

下血により発症した小腸腸間膜血管腫の1例

医療法人川崎病院外科, 同 病理*

船越 康信 山口 時雄 清家 洋二
中島 信一 小川 法次 木村 聡宏
吉田 康彦 後藤 正宣 安田 大成*

症例は68歳の女性で、大量下血を主訴に当院内科に入院した。腹部は平坦軟であった。胃および大腸内視鏡検査を施行したが出血部位を認めなかった。小腸造影 X 線検査では回腸末端部の圧排所見のみを認めた。下腹部 CT では骨盤腔内に径8cm 大の腫瘤を認め、血管造影では上腸間膜動脈の末梢に著明に圧排伸展された血管像と pooling を認めた。また、出血シンチグラフィー ($^{99m}\text{Tc-HSA}$) では右骨盤腔内に異常集積像を認めた。以上より、小腸腸間膜腫瘍の診断で手術を施行した。回腸末端部から80cm 口側の小腸腸間膜に拳拳大の腫瘍を認め、腫瘍を含めて小腸部分切除を行った。病理組織学的に小腸腸間膜血管腫と診断された。

小腸腸間膜血管腫の本邦報告例は自験例を含め16例のみしかなく極めてまれな腫瘍である。

はじめに

腸間膜に発生する血管原性腫瘍はまれであり、腸間膜血管腫の報告は1934年の馬場ら¹⁾の報告以来、自験例を含めて16例と極めて少ない。一般に腸間膜腫瘍は大きくならなければ臨床症状を発現しないために、巨大腫瘤を形成した後に発見される傾向にある。それゆえ、主症状は腹部腫瘤、腹部膨満および腹痛が多い。今回、我々は下血のみを症状とする小腸腸間膜血管腫の1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：68歳、女性

主訴：下血

既往歴：23歳時、虫垂切除術。33歳時、帝王切開術
家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1997年9月5日突然の大量下血を来し pre-shock 状態にて当院内科に緊急入院となった。胃および大腸内視鏡検査を施行したが出血部位を認めなかった。保存的治療を行っていたが、9月26日再度下血を認めた。下腹部 CT にて骨盤腔内に径8cm 大の腫瘤を指摘され、手術目的で11月5日当科転科となった。

入院時現症：血圧は触診上70/mmHg であり、眼瞼結膜に軽度の貧血を認めた。腹部は平坦軟であり、腫瘤は触知しなかった。

入院時検査所見：末梢血液検査では白血球6,700/ μl 、ヘモグロビン9.6g/dl、ヘマトクリット27.9%、血小板 $10.4 \times 10^4/\mu\text{l}$ と軽度の貧血を認め、血液生化学検査では GOT 156IU/L、GPT 127IU/L と軽度高値を示した。腫瘍マーカーの上昇は認めなかった。C 型肝炎ウイルス抗体が陽性であった。

胃内視鏡検査：著変なし。

大腸内視鏡検査：全結腸にわたり黒色便が認められたが出血源は同定できなかった。

小腸造影 X 線検査：回腸末端部の圧排所見と小腸壁の不整を認めた (Fig. 1)。

下腹部 CT 検査：骨盤腔内に径8cm 大の内部 density がやや不均一で一部に石灰化を伴った low density mass を認めた (Fig. 2)。

血管造影：上腸間膜動脈造影の動脈相において上腸間膜動脈の末梢に腫瘍により著明に圧排伸展された血管像と静脈相においても残存する pooling を認めた (Fig. 3)。

出血シンチグラフィー ($^{99m}\text{Tc-HSA}$)：静注24時間後でも右骨盤腔内で血液の貯留を示唆する異常集積像を認めた (Fig. 4)。

以上より、小腸腸間膜腫瘍を疑い11月11日手術を施行した。

手術所見：回腸末端部から80cm 口側の腸間膜に径約8cm 大の表面平滑で弾性硬一部軟の球形の腫瘍を認めた。左右の卵巣は正常であった。腫瘍を含め小腸

< 1999年11月30日受理 > 別刷請求先：船越 康信
〒652 0042 神戸市兵庫区東山町3 3 1 医療法人
川崎病院外科

Fig. 1 A barium meal study of the small intestine with compression study showed irregular external compression in the terminal ileum. The mucosa of the ileum was normal.

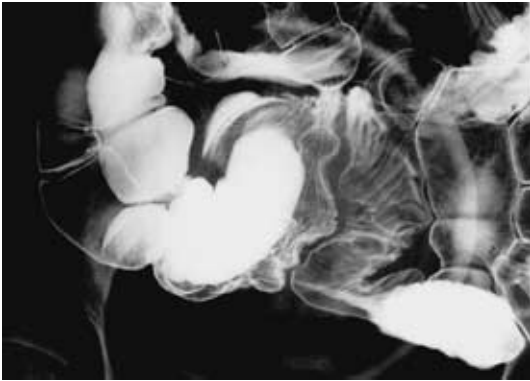


Fig. 2 Enhanced CT of the pelvis demonstrated a low density mass measuring 8 cm in diameter with a calcified lesion.

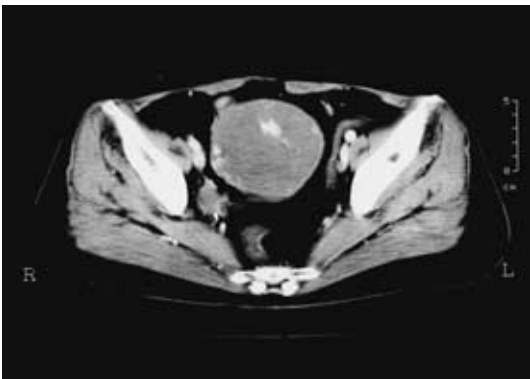


Fig. 3 Superior mesenteric arteriography revealed a stretching of the artery in the arterial phase, and pooling of the contrast medium (arrow) persisted at the right side of the pelvis.



Fig. 4 Scintigraphy with ^{99m}Tc-HSA demonstrated the persistent increased uptake (arrow) on delayed scans at the right side of the pelvis(24 hours after the injection)



を部分切除し端々吻合した。

摘出標本肉眼所見：回腸の肛門側断端から5cmの部位で腫瘍は小腸腔内に穿通しており、径1cm大の潰瘍を形成していた。断面では、腸壁に接する部分の赤褐色軟の部分と大部分を占める黄褐色の弾性硬の部分を認めた (Fig. 5)。

病理組織学的所見：赤色部は拡張した不規則な血管増生で成り、海綿状血管腫と診断された。細胞異型は認めなかった (Fig. 6)。また黄色部は石灰化やコレステリン沈着を伴った凝固壊死巣であった。

術後経過：術後21月経過した現在も、経過良好で再発を認めない。

考 察

腸間膜腫瘍には原発性のもと、他臓器の悪性腫瘍より2次的に転移してきたものとに大別される。山本ら²⁾の集計では本邦における147例の腸間膜腫瘍のうち

Fig. 5 Macroscopically, the tumor of the mesentrium was oval and 8 cm in diameter. The tumor penetrated the ileum and formed an ulcer. The cross section showed 2 portions ; one portion was thrombus, and the other was coagulative necrosis.



原発性のもは69例，続発性のもは78例であった．良性腫瘍ではリンパ管腫およびリンパ腫が22例（32%），脂肪腫15例（22%），線維腫11例（16%），血管腫9例（13%）の順であった．

血管腫の好発部位は顔面，頭部の皮膚，皮下，筋肉であることが多く，腹腔内臓器に発生することはまれである．Watsonら³⁾は1,308例の血管腫のうち内臓器に発生したものは4例であったと報告している．

特に腸間膜原発の血管腫はまれで，本邦でも1934年の馬場ら¹⁾の報告以来，小腸腸間膜血管腫の本邦報告例

Fig. 6 Microscopically, the tumor consisted of numerous dilated veins without endothelial atypia (H & E, x 400)



Table 1 The reported cases of the mesenteric hemangioma of the small intestine in Japan.

Case	Author		Age	Sex	Symptom				Size (max, cm)
					distention	tumor	pain	bleeding	
1	1934	Baba	49	M					17
2	1935	Sima	30	M					30
3	1956	Kudou	8	F					16
4	1960	Koyama	7	M					8
5	1962	Akimoto	29	M					15
6	1963	Ouyanagi	11	M					17.5
7	1968	Numata	52	F					20
8	1970	Chiba	57	F					5
9	1972	Watanabe	7	F					28
10	1975	Nomatsu	29	M					15
11	1976	Shibata	13	F					31.5
12	1983	Niimi	29	F					8
13	1983	Fujioka	31	F					8
14	1985	Nonami	62	M					8
15	1990	Kojima	47	M					16
16	1999	Funakoshi	68	F					8

は自験例を含めても16例を教えるにすぎない (Table 1)³⁾⁻¹⁷⁾。年齢、性別はさまざまであるが、多くの症例で腫瘍が大きくなってから診断されることが多く、主訴は腹部膨満、腹部腫瘤、腹痛が多い。合併症としては小腸の血管腫に多くみられる大量下血例は少なく¹⁸⁾⁻¹⁹⁾、大量の下血を認めたものは症例9、15および自験例の3例であり、粘膜面まで穿破したものは症例9と自験例の2例である¹¹⁾⁻¹⁷⁾。ただし、症例15はKasabach-Merit症候群合併によるものであった。下血のみを症状として発見されたものは自験例のみである。このように、血管腫を含めた腸間膜腫瘍は大きくならなければ一般的に臨床症状を発現しない傾向にある。

腹腔内に発生する血管腫としては肝血管腫が最も高頻度に認められるが、その血管造影上の特徴は動脈相から静脈相後期まで持続する綿花状の造影剤の pooling である。小腸腸間膜血管腫において血管造影を施行されたものは自験例を含めて3例のみである¹⁶⁾⁻¹⁷⁾。これら3例においては腸間膜腫瘍とは術前診断をなされたが、血管腫とまで正しく術前診断をなされていない。血管腫は退行性変化をおこし、しばしば部分的な壊死、線維化や硝子化を起こすことがある。自験例でも腫瘍の大部分がこのような凝固壊死巣に置き換わっていたため、肝血管腫の血管造影においてみられるような典型的な綿花状の pooling がみられなかったと考えられる。

また、肝血管腫においては一般にその診断において血液プールのシンチグラフィーが有用であるとされ、その特徴は血流相イメージでの血流亢進がなく、その後の連続画像で腫瘍がゆっくりと濃染され、20分以降の遅い像で均一に濃染されるのが典型的とされる²⁰⁾⁻²¹⁾。小腸腸間膜血管腫の本邦報告例では自験例においてのみ出血シンチグラフィーが施行されている。そのシンチグラフィーでの遅延像での著明な集積像を retrospective に検討すると血管腫に特徴的な所見であったと思われる。肝血管腫では2cm以上のものに対しては診断精度も高く、その有用性は認められている²⁰⁾⁻²¹⁾。腸間膜血管腫においても肝血管腫同様にシンチグラフィーにて静注直後よりも遅延像でより強い集積像を示すものと思われる。

腸間膜血管腫は極めてまれな腫瘍であるが、腸間膜腫瘍の診断においては本例を念頭においた診断治療が必要であると思われる。

文 献

- 1) 馬場信秀, 岡本栄次, 藤井善男: 肝臓及腸間膜二存スル巨大ナル海綿様血管腫ノ各一例及其帰結ニ就イテ. 台湾医会誌 33: 1301-1307, 1934
- 2) 山本誠己, 勝部有二, 奥 勝次ほか: 原発性腸間膜血管肉腫の1例. 臨外 34: 285-290, 1979
- 3) Watson WL, McCarthy WD: Blood and lymph vessel tumors: Report of 1056 cases. Surg Gynecol Obstet 71: 569-588, 1940
- 4) 島 薫: 巨大ナル腸間膜血管腫. 日外宝 12: 1381, 1935
- 5) 工藤三郎: 卵巣腫瘍茎捻転と誤診された腸間膜腫瘍の1治験例. 外科の領域 4: 526-527, 1956
- 6) 小山 登, 清水忠治: 腸間膜に原発した海綿様血管腫の1例. 信州医誌 9: 950-907, 1960
- 7) 秋元辰二: 小腸間膜に発生した海綿状血管腫の1治験例. 外科 24: 1187-1188, 1962
- 8) 大柳和彦, 三浦良一, 八木達夫: 小腸間膜に発生した海綿状血管腫の治験例. 青森中病医誌 8: 222-225, 1963
- 9) 沼田公雄, 宮本 宏: 空腸壁ならびに同腸間膜に存在せる海綿様血管腫の1例. 外科 30: 630-633, 1968
- 10) 千葉康夫, 大沢一郎, 小田嶋栄作ほか: 腸間膜血管腫の1例. 臨外 25: 1059-1061, 1970
- 11) 渡辺 章, 佐藤重夫, 岩松 正: 腸間膜海綿状血管腫の一治験例 小児腹部腫瘤の鑑別を中心として. 青森中病医誌 17: 201-208, 1972
- 12) 野松憲一, 清水 力, 平塚弘之ほか: 巨大腸間膜血管腫による小腸捻転症の1例. 日臨外医会誌 36: 442, 1975
- 13) 柴田英徳, 山口達夫, 谷村 晃ほか: 巨大な腸間膜血管腫の1例. 外科 38: 970-973, 1976
- 14) 新美隆男, 河村英之, 小山芳雄ほか: 小腸腸間膜血管腫の1治験例. 外科診療 25: 379-382, 1983
- 15) 藤岡忠慶, 吉田英晃, 白鳥常男: 小腸腸間膜血管腫の1例. 外科治療 49: 372-375, 1983
- 16) 野並芳樹, 山城敏行, 北川 素ほか: 小腸腸間膜血管腫の1例 本邦集計による考察. 消外 8: 1285-1289, 1985
- 17) 小島善嗣, 松井陽一, 川西 洋ほか: 小腸腸間膜血管腫の1例. 臨外 45: 253-256, 1990
- 18) Akamatsu T, Matsuda Y, Tsugane E et al: A case of multiple cavernous hemangioma of the small intestine and clinical review of Japanese literature. Gastroenterol Jpn 25: 494-498, 1990
- 19) Ramanujam PS, Venpatesh KS, Bettinger L et al: Hemangioma of the small intestine: case report and literature review. Am J Gastroenterol 90: 2063-2064, 1995
- 20) Bree RL, Schwab RE, Glazer GM et al: The var-

ied appearances of hepatic cavernous hemangiomas with sonography, computed tomography, magnetic resonance imaging and scintigraphy. Radiographics 7 : 1153 1175, 1987

21) 伊藤和夫, 桑原慎一, 早坂 隆ほか : ^{99m}Tc 赤血球
肝血流プール SPECT による肝血管腫の診断. 臨
放 36 : 1669 1674, 1991

A Case Report : Mesenteric Hemangioma of the Small Intestine with Melena

Yasunobu Funakoshi, Tokio Yamaguchi, Youji Seike, Nobukazu Nakashima,
Noritsugu Ogawa, Toshihiro Kimura, Yasuhiko Yoshida,
Masanobu Gotou and Taisei Yasuda*
Department of Surgery and Pathology*, Kawasaki Hospital

A 68-year-old woman was admitted with massive melena. There were no palpable abdominal masses, and her abdomen was not distended. Repeated gastrointestinal fiberoscopy and total colonoscopy to the cecum yielded normal findings. A barium meal study of the small intestine revealed only irregular external compression in the terminal ileum. Enhanced CT of the pelvis, however, showed a low density mass measuring 8 cm in diameter. Superior mesenteric arteriography showed stretching of the artery in the arterial phase, and pooling of the contrast medium at the end of the artery in the venous phase. In the pelvis, radionuclide scintigraphy with ^{99m}Tc -HSA showed persistent increased uptake on delayed scans. We diagnosed the patient as having mesenteric tumor of the small intestine and performed partial resection of the small intestine. The tumor was approximately 8 cm in diameter and was located 80 cm proximal to the end of the ileum. Pathological examination showed the tumor to be a cavernous hemangioma. Mesenteric hemangioma of the small intestine is extremely rare, with only 15 cases ever reported in Japan. Massive bleeding has never been reported as a main symptom. We have reported a woman with mesenteric hemangioma of the small intestine who presented with melena.

Key words : cavernous hemangioma, mesenteric tumor, melena

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 386 390, 2000]

Reprint requests : Yasunobu Funakoshi Department of Surgery, Kawasaki Hospital
3 3 1 Higashiyama-cho, Hyougo-ku, Kobe, 652 0042 JAPAN