

大量下血をきたした空腸粘膜下動脈瘤破裂の1例

三重県立総合医療センター外科

成田 公昌 杉平 宣仁 山村 剛司
増田 亨 矢野 秀 坂倉 究

症例は18歳の女性。主訴は多量下血、ショック。胃内視鏡、大腸内視鏡では出血源は不明であった。保存的療法を行いつつ2度腹部血管造影を行ったが出血源は不明であった。出血が続くため試験開腹術を施行した。手術所見ではTreitz靭帯より約90cm肛門側の空腸に直径1cmの粘膜下腫瘍様の硬結を認め、同部の部分切除を行った。最終診断は病理学的に空腸粘膜下動脈瘤破裂であったことが判明した。術後経過は良好で2週間後に退院した。最近の小腸粘膜下動脈瘤破裂の報告例では腹部血管造影、消化管出血シンチグラフィーにて出血部位が同定できたとの報告も見られるが、本症例のように止血時には腹部血管造影でも出血部位は確認出来ないため、若年者の原因不明の多量止血を認めた場合、時期を逸することなく試験開腹を行うべきと思われた。

はじめに

小腸動脈瘤破裂は、比較的若年者に多い原因不明の疾患で、何ら誘因なく突然多量の下血を見る。今回、我々は2度の腹部血管造影でも出血部位を同定出来ず試験開腹にて病巣を発見した1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：18歳、女性

主訴：多量下血、ショック

家族歴：父方祖母に完全内臓逆位、肝臓癌

母方祖母に乳癌、肺癌

既往歴：特記事項なし。

現病歴：平成6年10月9日意識消失を来たし倒れているところを発見され近医に搬送された。多量下血を認めショック状態であった。直ちに胃内視鏡検査、大腸内視鏡検査を施行されたが出血源を認めず。精査目的で当院入院となった。

入院時現症：血圧80/40mmHg、顔面蒼白、意識なし。腹部平坦、軟、筋性防御なし

血液検査所見：赤血球数 $197 \times 10^4 / \text{mm}^3$ ヘモグロビン値5.9mg/dlと著明な貧血状態を示していた。またヘマトクリット値17.1%、血小板数 $7.8 \times 10^4 / \text{mm}^3$ からも多量の失血が考えられた。白血球数は $9,100 / \text{mm}^3$ と軽度上昇していた。

濃厚赤血球21単位輸血、輸液にて血圧、意識レベルの改善をみた。造影CT、腹腔動脈・上腸間膜動脈の血管造影を行った。CTでは腸管内に多量の液体貯留を認めた。腹腔内出血は認めなかった。腹部血管造影では出血部位は不明であった(Fig. 1)。

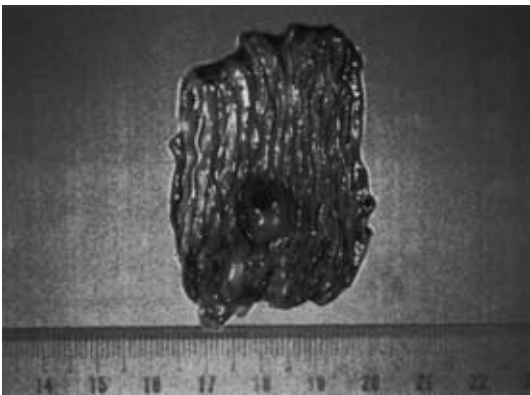
Fig. 1 Angiogram on Superior Mesenteric Artery. Neither aneurysm nor bleeding was located in angiography on superior mesenteric artery.



Fig. 2 In the operation, a hard lump of 1 cm in diameter was found on the anal side of the jejunum 90 cm away from the Treitz ligament.



Fig. 3 Resected specimen. A soft and round mass is on submucosal layer. The center is filled with hematoma.



Vital signs が安定したのでそのまま保存的に経過観察とした。8 時間後再び多量に下血し血圧低下したため 2 回目の腹部血管造影を施行したが、有意な所見は得られなかった。そのため発症後約 24 時間で試験開腹を行った。

手術所見：腹腔内出血なし。黄色透明腹水中等量あり。腸管内に多量の血液が透見された。Treitz 靭帯より約 90cm 肛門側の空腸腸間膜対側漿膜面に直径約 1 cm の半球状、白色の粘膜下腫瘍様の硬結を認めた (Fig. 2)。同部を出血源と判断し約 5cm にわたり空腸部分切除を行った。切除標本を開くと 8×5mm 弾性

Fig. 4 Histological finding showed submucosal aneurysm ruptured to inner jejunum.

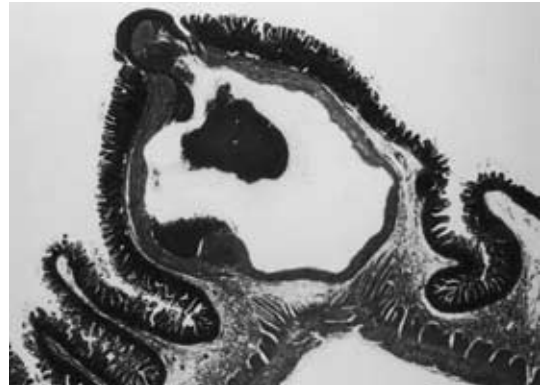


Fig. 5 Apex of aneurysm was closed by the hematoma.



軟、辺縁整、球状の粘膜下嚢胞性腫瘍が認められた。中心はやや陥凹し、内部に凝血塊が充満していた (Fig. 3)。

病理所見：粘膜下層の動脈瘤が腸管内腔に向けて破裂していた。血管壁は中膜の断裂をみとめた。炎症細胞の浸潤なく、動脈硬化性変化、梅毒性変化も認めら

れなかった (Fig. 4). 先端の動脈瘤破裂部には凝血塊が血栓を形成しておりこれにより一時的に止血作用が働いていたと考えられた (Fig. 5).

術後経過: 術前後で合計 33 単位の濃厚赤血球輸血を要したが術後経過は良好で術後 2 週間で退院した. 術後 3 年経過した現在でも特に症状は認められていない.

考 察

小腸動脈瘤破裂は極めてまれな疾患で今回調べた範囲では、本邦では本症例を含めて 26 例が報告されている^{1)~25)}にすぎない (Table 1). 外国では 1944 年より報告がみられ²⁶⁾, Gueco ら²⁷⁾は論文の中で小腸の血管性病変の頻度は 56,000 例中 3 例ときわめてまれであることを述べている. 本邦での患者の年齢は 13 ~ 60 歳に見られ平均は 28.5 歳, 若年者に多い傾向が見られる. 男女比は 15:11 であった. 突然の多量下血で発症し, ショック状態を伴うのが共通した症状である. 吐血は

ほとんど見られない. 貧血は著しく, 多量輸血を要しているものが多い. 好発部位は Treitz 靱帯より 2m 以内の空腸が多く, 大きさは 1cm 以下が大部分を占める. 病因は先天的なものであると考えられているが確定はされていない. これまでの報告ではすべての症例で手術が施行されている. 小腸からの動脈性の出血に対する止血法は小腸ファイバーが届く範囲内ではクリップでの止血が行える. それ以下の範囲では腹部血管造影で動脈の最終分枝まで select 出来れば止血は理論的には可能であるとされている.

現在, 診断の手段としては出血シンチグラフィ, 腹部血管造影, 腹腔鏡による検索, 試験開腹がある.

1970 年代にはほとんどが試験開腹にて診断されていたが, 1980 年代に入ると大部分の症例でシンチグラフィ, もしくは腹部血管造影が試みられ, 診断がなされているものも多い. しかし腹部血管造影を施行された 14 例中, 本症例を含む 5 例が陽性所見が得られて

Table 1 Reported cases of ruptured submucosal aneurysm of the small intestine in Japan

No	author	year	age	sex	position (from Treitz lig.)	angiography	scintigram scan	method of diagnosis
1	Hasumi	1971	29	m	50 cm			probe laparotomy
2	Yamada	1975	37	m	190 cm			probe laparotomy
3	Orii	1975	18	m	150 cm	negative		probe laparotomy
4	Taniguti	1977	20	m	180 cm			probe laparotomy
5	Takaya	1979	32	m	14 cm			probe laparotomy
6	Takaya	1979	26	m	400 cm			probe laparotomy
7	Ueki	1979	31	f	*100 cm			probe laparotomy
8	Sasaki	1980	49	f	80 cm	poisitive		angiography
9	Nakai	1980	60	m	100 cm			probe laparotomy
10	Suzuki	1983	52	f	70 cm	poisitive		angiography
11	Rikibu	1983	24	f	*215 cm	poisitive		angiography
12	Ishikawa	1985	14	f	50 cm	poisitive	poisitive	scintigram, angiography
13	Mori	1986	20	m	180 cm	poisitive		angiography
14	Takeuchi	1986	25	m	200 cm		poisitive	scintigram
15	Okusiba, Oono	1987	33	f	50 cm	poisitive		angiography
16	Tanaka	1988	20	f	80 cm	poisitive	poisitive	scintigram, angiography
17	Shiroko	1989	21	m	40 cm			probe laparotomy
18	Inada	1990	45	m	255 cm	poisitive		angiography
19	Yamano	1994	38	m	200 cm	negative		probe laparotomy
20	Horii	1994	14	m	120 cm		negative	probe laparotomy
21	Our case	1994	18	f	90 cm	negative		probe laparotomy
22	Tanaka	1997	44	m	150 cm			probe laparotomy
23	Asano	1998	13	m	*180 cm		poisitive	scintigram
24	Iwase	1999	24	f	20 cm	negative		double contrast X-ray
25	Okugawa	1999	14	f	*150 cm	negative	negative	probe laparotomy
26	Yoneda	2000	21	f	jejunum	poisitive		angiography

* from ileum end

おらず、同一患者に複数回試みられた中でも false negative であった症例が2例あった。腹部血管造影は有効な検査であるが絶対的な検査手段とはいえない。Baum²⁸⁾らも上部消化管出血の21例に対して腹部血管造影を行い正診例は18例であったと述べている。腹部血管造影が行える程度に容態が安定している時は動脈瘤を血栓が占居している場合も多いであろう。Tweedleら²⁹⁾も検査時偶然止血されている場合は所見が得られないこと、本疾患は急激にショックに陥ることなどの理由から腹部血管造影の有用性の限界を指摘している。本症の腹部血管造影の特徴は血液の微小な pooling 像と出血による腸管内腔の造影像であるとされる。しかし本症例は腸管内の非常に小さな血管の破綻であるため、腸管内出血の部位は判別できても術前に動脈瘤の診断までついているものは少ない。

シンチグラフィーではより少ない出血量で所見が得られ、感度は高いが腹部血管造影では0.5ml/min、シンチグラフィーでは0.15ml/minの出血で所見が得られるとされている^{30,31)}局所診断が困難である。本疾患でシンチグラフィーが行われた症例では、6症例中2例が false negative であった。

近年は診断のついていない疾患の場合腹腔鏡による検索が行われるが、本疾患の場合これまでのところ腹腔鏡での手術を行った報告はない。病巣が非常に小さく目立たない、開腹してもなお病巣が発見できなかった症例が数例報告されている、などの理由よりやや困難が予想される。

若年者で小腸からの多量出血が疑われる場合本疾患を念頭に置き腹部血管造影で陽性所見が得られなくても時期を逸することなく手術を行うべきと考える。全身状態が許せばシンチグラフィー、腹部血管造影、腹腔鏡による検索、試験開腹の順で検査を進めていくのが現在最も確度の高い方法と言えよう。

なお本稿の要旨は第46回日本消化器外科学会総会(1995年7月21日)にて発表した。

文 献

- 蓮見昭武, 植田正昭, 大波克夫ほか: 空腸微小動脈瘤の1治験例. 胃と腸 6: 1741-1745, 1971
- 山田真一, 村上平八郎, 柳田昭一郎ほか: 大量下血をきたした小腸粘膜下動脈瘤破裂の1治験例. 神奈川医学会誌 2: 67, 1975
- 折井正博, 山本修三, 宮川 健ほか: 小腸粘膜下動脈瘤破裂による消化管出血の1治験例. 神奈川医学会誌 2: 67-68, 1975
- 谷口哲三, 鳥巢隆資, 発知紀之ほか: 空腸微小動脈瘤破裂の1治験例. 内科 39: 489-492, 1977
- 高屋誠章, 落合浩平, 真島 光ほか: 大量出血をきたした小腸粘膜下動脈瘤破裂の2治験例. 日消外会誌 12: 110, 1979
- 植木重文, 岡本英三, 豊坂昭弘ほか: 回腸壁に微小動脈瘤破裂の1治験例. 日消病会誌 76: 2267-2272, 1979
- 佐々木泰二, 沢田公任, 斉藤勝彦ほか: 消化管大量止血を伴う空腸動脈瘤の1例. 岩手病医学会誌 20: 122-123, 1980
- 中井志郎, 武沢 巖, 高田一実ほか: 消化管出血をくり返した空腸壁動脈瘤の1例. 広島医 33: 1377, 1980
- 鈴木荘太郎, 中崎久雄: 空腸粘膜下微小動脈瘤破裂の1治験例. クリニカ 10: 647-649, 1983
- 力武 潔, 川口新一郎, 永田一良ほか: 血管造影にて出血部位を診断し救命しえた回腸微小動脈瘤の1例. 救急医 7: 757-760, 1983
- 石川 操, 中田幸之介, 金 義孝ほか: 大量消化管出血をきたした空腸壁内血管奇形の1例. 小児外科 17: 1397-1402, 1985
- 森 光生, 茂木正寿, 篠沢洋太郎ほか: 小腸動脈瘤の1治験例. 日救急医学会関東誌 7: 116-117, 1986
- 竹内正幸, 平尾雅紀, 石後岡正弘ほか: 大量消化管出血をきたした小腸動脈瘤の1治験例. 北海道外科誌 31: 75-78, 1986
- 奥芝俊一, 森田 譲, 斉藤博哉ほか: 空腸粘膜下動脈瘤破裂の1例. 臨放線 32: 1059-1062, 1987
- 大野正博, 渡辺公二, 壇上 泰ほか: 大量消化管出血を伴う小腸血管病変の2例. 消外 10: 1037-1041, 1987
- 田中浩司, 広田省三, 佐古正雄ほか: 空腸粘膜下動脈瘤破裂の1例. 臨放線 33: 329-332, 1988
- 白子隆志, 操 尚, 榎木良友ほか: 腸管内に穿破した空腸壁に壁動脈瘤の1治験例. 外科 51: 1073-1075, 1989
- 稲田俊雄, 石田 誠, 影山 浩ほか: 血管造影にて診断しえた空腸粘膜下動脈瘤破裂の1例. 画像診断 10: 238-241, 1991
- 山野泰穂, 遠藤高夫, 伊藤英人ほか: 突然の下血で発症し、術中内視鏡検査が有用であった小腸粘膜下動脈瘤破裂の1例. Gastroenterol Endos 36: 2210-2213, 1994
- 堀内 格, 岸川輝彰, 伊藤 寛ほか: 大量下血をきたした空腸粘膜下動脈瘤破裂の1例. 日小児外会誌 30: 108-111, 1994
- 田中孝幸, 望月智行, 佐藤徹也ほか: 大量下血を呈した空腸粘膜下動脈瘤破裂の1治験例. 埼玉医学会誌 31: 983-987, 1997
- 朝野 聡, 窪田昭男, 米倉竹夫ほか: 99mTc-HSA-

- Dを用いた出血シンチグラムが出血部位同定に有用であった小児の小腸粘膜下動脈瘤の1例. 日小児放線会誌 14 : 44-47, 1998
- 23) 岩瀬博之, 渡部 脩, 鈴木義真ほか: 小腸粘膜下動脈瘤破裂の1例: 日外科系連会誌 24 : 879-882, 1999
- 24) 奥川恭一朗, 佐野 正, 星 昭二ほか: 消化管大量出血をきたした回腸粘膜下動脈瘤破裂の1思春期例. 静岡済生会総合病医誌 15 : 13-22, 1999
- 25) 米田和英, 井口博善, 松本隆裕ほか: 大量下血で発症した空腸粘膜下動脈瘤破裂の1例: 臨放線 45 : 562-565, 2000
- 26) Levine J, Valk AD : Aneurysm with rupture of a submucosal artery in the jejunum. Am J Clin Pathol 14 : 586-589, 1944
- 27) Gueco JM, Rosenberg N, Hart JT et al : Ruptured aneurysm of jejunum with massive intestinal bleeding. Am Surg 35 : 643-647, 1969
- 28) Baum S, Nusbaum M, Clearfield HR et al : Angiography in the diagnosis of gastrointestinal bleeding. Arch Intern Med 119 : 16-24, 1967
- 29) Tweedle DEF, Lesna M : Submucosal aneurysm of the jejunum. J R Coll Surg Edinb 20 : 205-207, 1975
- 30) Alavi A, Ring EJ : Localization of gastrointestinal bleeding : Superiority of ^{99m}Tc sulfur colloid compared with angiography. AJR 137 : 741-748, 1981
- 31) Mckusick KA, Froelich J, Callahan RJ et al : ^{99m}Tc red blood cells for detection of gastrointestinal bleeding : Experience with 80 patients. AJR 37 : 1113-1118, 1981

A Case of Ruptured Submucosal Aneurysm of the Jejunum

Kimimasa Narita, Nobuhito Sugihira, Takeshi Yamamura,
Tohru Masuda, Hide Yano and Kiwamu Sakakura
Department of Surgery, Mie Prefectural General Medical Center

An 18-year-old woman was admitted to the hospital with a massive intestinal hemorrhage resulting in shock. The bleeding point was not detected by the fiberoptic examination of the stomach, duodenum and colon. Repeated abdominal angiography did not reveal the intestinal bleeding point, so an exploratory laparotomy was performed. A hard mass 1 cm in diameter was found at 90cm on the anal side of the jejunum from the Treitz ligament. Partial resection of the jejunum including the hard mass was performed, and her postoperative course was uneventful. She was discharged two weeks after the operation. In the case of massive intestinal hemorrhage, emergent exploratory laparotomy is recommended when angiographic and scintigraphic examinations cannot visualize the bleeding point.

Key words : submucosal aneurysm, massive bleeding, abdominal angiography

[Jpn J Gastroenterol Surg 35 : 322-326, 2002]

Reprint requests : Kimimasa Narita Department of Surgery II, Mie University Medical School
2-174 Edobashi, Tsu, 514-8507 JAPAN