

大量下血によるショックで発症した小腸クローン病の1例

JA 岐阜厚生連総合病院養老中央病院外科, 岐阜大学第1外科*

安村 幹央 飯田 辰美 後藤 全宏 岡田 将直
村瀬 勝俊 水谷 知央 二村 直樹* 阪本 研一*

大量下血で発症した小腸クローン病の1例を経験した。症例は16歳の男性。突然の大量下血の後意識消失し、出血性ショック状態で来院した。上部下部消化管内視鏡では異常を認めず、上腸間膜動脈造影で、回腸動脈支配領域に extravasation を認めた。入院後10単位の輸血を要し、下血が続いたため、入院から4日目に開腹術を施行した。小腸壁は全体に充血し浮腫状で腸間膜側に肥厚が目立ち、fat wrapping を認めた。腸管切開により腸間膜側に縦走潰瘍を認めためクローン病を疑い回腸を約80cm 切除し、端々吻合した。摘出標本で腸間膜側に65cm にわたり連続する縦走潰瘍と2か所の浅い潰瘍を認めた。病理組織学的には全層性の炎症所見と非乾酪性肉芽腫を認め、クローン病と診断された。クローン病で出血を初発症状とし、緊急手術を要する事は極めてまれである。自験例は術後6年7か月を経過した現在まで再発の徴候を認めていない。

はじめに

クローン病はまれにイレウス、消化管穿孔など、急性腹症として発症し緊急手術の対象となることがある。しかし、大量出血で発症し緊急手術となる症例はきわめてまれである。今回、我々は突然の大量出血によりショック状態となった16歳の男性に対し、手術により小腸クローン病と確定した症例を経験したので報告する。

症 例

症例：16歳，男性

主訴：突然の大量下血と意識消失

家族歴，既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1994年5月7日夜，トイレで突然の大量下血の後に意識消失状態となり，当院救急外来に搬送された。

入院時現症：身長163cm，体重45kg，体温37.1。顔面蒼白だが，意識清明であった。血圧76/40mmHg，脈拍120/分，整。腹部は平坦，軟で圧痛を認めず，腫瘤は触知しなかった。

入院時検査成績：赤血球数280万/mm³，Hb 6.8g/dl，Ht 20.8%と貧血を認めた。また，軽度の白血球増多，CRP高値と低蛋白，低アルブミン血症を認めた。肝機能，腎機能，電解質に異常所見を認めなかった。

(Table 1)。

腹部単純X線検査：腹腔内遊離ガス像やニボ一像などの異常所見は認めなかった。

腹部超音波検査：肝臓・胆嚢・膵臓に異常所見を認めず，腹腔内液体貯留も認めなかった。

上部消化管内視鏡検査：食道・胃・十二指腸に出血源は認められなかった。

下部消化管内視鏡検査：微温湯で洗腸し，S状結腸まで観察したが，粘膜面に異常所見は認められず，口側からの新たな出血は見られなかった。

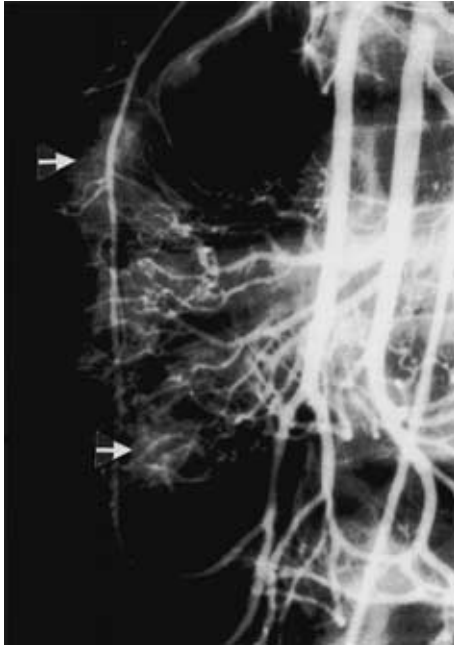
入院後，輸液によりショック状態は脱したが，その後も少量の下血が続き，入院後3日目に再び大量の下血とともにショック状態となった。上腸間膜動脈造影

Table 1 Laboratory findings on admission

RBC	280 × 10 ⁴ /mm ³	TP	5.0 g/dl
Hb	6.8 g/dl	Alb	2.5 g/dl
Ht	20.8 %	BUN	8.8 mg/dl
WBC	10,400 /mm ³	Cre	0.6 mg/dl
Plt	28.5 × 10 ⁴ /mm ³	Na	132 mEq/l
GOT	29 IU/l	K	4.0 mEq/l
GPT	8 IU/l	Cl	98 mEq/l
LDH	626 IU/l	BS	92 mg/dl
T. bil	0.9 mg/dl		
Amy	76 IU/l		
CRP	4.6 mg/dl		

で、回腸動脈支配領域に血管外漏出像を認め、出血源と考えられた(Fig. 1)。TAEが試みられたが止血でき

Fig. 1 Superior mesenteric arteriogram revealed the extravasation of dye into lumen of bowel from ileal branches of superior mesenteric artery (arrows). We supposed that the site of bleeding was distal ileum.



ず、手術目的で当科を紹介され、5月11日、開腹術を施行した。入院後、手術までにMAP10単位の輸血を要した。

手術所見：腹部正中切開で開腹した。少量の漿液性腹水を認めた。結腸内には多量の血液が透見されたが、漿膜面の異常、腫瘤などは認めなかった。小腸壁は全体に充血し浮腫状で腸間膜側の著明な肥厚、fat wrappingを認めた。小腸間膜リンパ節は炎症性に腫大していた。漿膜側の所見から最も炎症の強いと思われた、Treitz 靭帯から約120cmの回腸腸間膜対側を約4cm切開し、内腔を観察した。同部位の腸間膜側粘膜面に深い縦走潰瘍を認め、出血源と思われた。クローン病を疑い病変の範囲を漿膜側の変化から推定し、回腸末端40cmから口側へ約80cm長の回腸を切除した。切除断端の粘膜面に病変がないことを確認し、回腸回腸端々吻合を施行した。

摘出標本肉眼所見：摘出した回腸を腸間膜対側で切開した。口側切離断端から4cmと9cmのところから2箇所の浅い潰瘍を認め、口側切離断端から15cmのところから始まり肛門側切離断端から1cmのところに至る、65cmに及ぶ縦走潰瘍を認めた(Fig. 2)。縦走潰瘍は肛門側切離断端から約20cmの部分で最も深く、ほぼ腸管全周におよんでいた。また、腸管壁は腸間膜附着側で短縮し、対側では著明に肥厚していた。

病理組織学的所見：病理標本ルーペ像で、潰瘍は固有筋層に達しており、粘膜さらに粘膜下層に至るまで著明な浮腫とリンパ球の浸潤が認められた(Fig. 3a)。

Fig. 2 The resected specimen was about 80 cm in length. It showed the longitudinal ulcer about 65 cm in length and other two tiny aphthoid lesions proximal to the main ulcer. Segmental thickening was found in some part of the specimen but characteristic changes such as cobblestone appearance, fistula formation were not seen in the specimen. In the longitudinally ulcerated area blood clot was found, although there was no direct demonstration of a bleeding vessel.

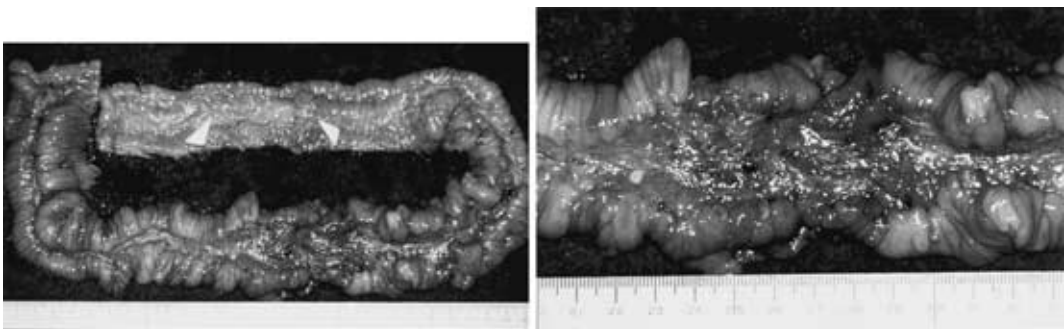
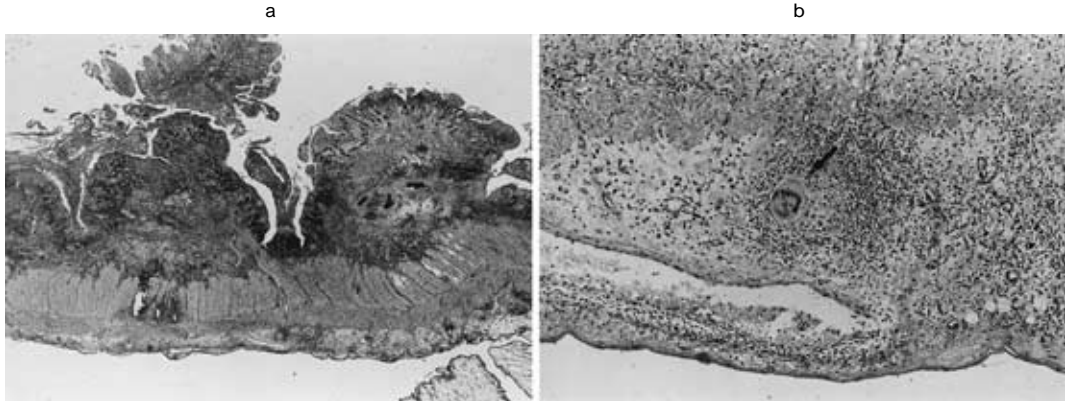


Fig. 3 a : Ulceration extended into the muscular layer. Transmural inflammation was present and lymphoid aggregates were found in the submucosa and serosa beneath a mucosal ulcer(H.E. $\times 10$) b : Multinucleated giant cells without central caseous necrosis (allow) were seen in each layers beneath submucoma. The same cells were also found in the dissected ileal mesenteric lymph nodes(H.E. $\times 100$)



この他に、UI-II の表在性潰瘍も多数認めた。リンパ球の浸潤は筋層、粘膜下層にも存在し、全層性炎症性病変と考えられた。同標本の拡大像では、粘膜下層から漿膜下層にかけて非乾酪性類上皮細胞肉芽腫が観察された (Fig. 3b)。また、同時に検索した小腸腸間膜リンパ節にも同様の乾酪性類上皮細胞肉芽腫が認められた。裂溝は認められなかったが、縦走潰瘍、全層性炎症性病変、サルコイド様非乾酪性肉芽腫より病理学的にクローン病と診断された。

術後経過：術後3か月目に施行した経口小腸造影では、造影剤の通過は良好で、明らかな狭窄、潰瘍の遺残は認められなかった。術後は完全静脈栄養を行い、第30病日より成分栄養剤投与を開始、第44病日に完全成分栄養とし、第91病日退院した。退院後は完全成分栄養とし、2か月後より半消化態栄養を加えた。術後半年経過時まで再燃が認められず、以降は次第に日常食に移行し、以後無治療で経過観察中である。術後7年6か月が経過した現在、再燃再発の傾向は認められていない。

考 察

Crohn病の新しい診断基準(案)によると、本疾患は原因不明で、主として若い成人にみられ、浮腫、線維(筋)症や潰瘍を伴う肉芽腫性炎症性病変からなり、消化管病変の特徴は縦走潰瘍、数石像、炎症性腫瘤、裂孔やアフタ性潰瘍であるとされている。すべての消

化管に潰瘍性病変が生じるため、出血源となる部位は広い¹⁾。

臨床症状としては、腹痛、体重減少、下痢、発熱、全身倦怠感などが多く、下血の頻度は少ないと言われていたが、診断時に13.4%から43.6%の症例に顕出血を認めるとの報告があり、下血は決してまれな症状ではない²⁾⁻⁵⁾。しかしながら、生命を脅かすような大量出血を来す症例はまれであり、その頻度は約0.6~6.0%と報告されている⁶⁾⁻⁸⁾。

大量出血の定義は、血圧を維持するために輸血を要する³⁾、Hbが3mmol/l低下する⁹⁾、4単位以上(2l以上の全血)の輸血を要する¹⁰⁾、2週間で4単位以上の輸血を要する⁷⁾など、報告者によって異なるが、自験例は入院時に明らかな循環血液量の低下をきたし、手術までに10単位の輸血を要しており、大量出血の条件は満たしていると思われる。

出血部位は大腸に多いという報告が多い¹¹⁾が、Crohn病の罹患部位に比例して小腸に多いとする報告^{3,8)}も見られる。本邦における大量出血例は自験例のごとく圧倒的に回腸病変が多い^{6,12)}。

自験例は大量下血によるショック状態にあり、ショックに対する治療とともに出血部位の同定が必要であったが、上部、下部消化管内視鏡で出血源を同定しえず、腹部血管造影を施行した。Crohn病の大量出血において腹部血管造影で出血部位が診断可能である

のは40~67%⁷⁾⁻⁹⁾とされており、有用であるといわれている¹¹⁾。自験例では回腸動脈支配領域に血管外漏出像を認め、出血源と考えられた。自験例ではTAEで止血しえなかったが、バソプレッシン動注、TAEにて止血を得た報告例も見受けられる¹³⁾¹⁴⁾。

Crohn病の大量出血時における初期治療として、ステロイドとサイクロスポリンの投与によって止血し手術を回避できたとの報告例があり、最初に試みるべき方法と思われる¹¹⁾。しかし、非手術例の35%に再出血が認められ、結局、大量出血症例の90%には手術が必要となるとの報告もあり⁹⁾、手術に逡巡してはならないと思われる。自験例ではCrohn病の診断がついておらず、保存的治療は選択できなかった。また、小腸以外の出血源は否定的であり、大量出血を繰り返したことから手術適応があると判断した³⁾。

手術所見では腸間膜側の回腸漿膜面に特徴的なfat wrappingが認められ、Crohn病と判断した。出血部位診断は漿膜面の変化から推定し、腸管切開によって出血源と考えられる深い縦走潰瘍を確認し切除範囲を決定した。近年、short bowel syndromeなどの合併症を防ぐ意味で病変部位のみ的小範囲切除が主流となっている¹⁵⁾¹⁶⁾。自験例では連続した65cmの縦走潰瘍に対し、切除腸管は80cmであり、術後造影検査所見上は病変の遺残を認めなかった。

術後は完全静脈栄養で管理し、第44病日に完全成分栄養とした。成分栄養はCrohn病治療の第1選択とされ、短期効果はステロイドと同等あるいはそれ以上に有効とされる¹⁷⁾。自験例では再燃傾向が全く認められなかったため、2か月後より半消化態栄養を加え、さらに半年後には日常食に移行し、以後無治療で経過観察中である。我が国ではCrohn病の長期予後が必ずしも不良とは言えず、なかには極めて良好な臨床経過を示す患者群が存在すると考えられており¹⁸⁾、自験例もこの患者群に含まれるものと思われる。しかしながら、大量出血例に関しての術後再出血率は3.5%から10%とされ⁷⁾⁸⁾、8年後に再出血した症例も報告されている⁹⁾ことや、大量出血例に限らず、一般にクローン病の術後再発率、再手術率が高いことを考慮すると¹⁵⁾、今後も慎重な経過観察が必要であると思われる。

文 献

- 1) 八尾恒良：クローン病診断基準(案)について。胃と腸 31：451-464, 1996
- 2) 眞武弘明, 松井敏幸, 八尾恒良：【出血性消化器疾患】炎症性腸疾患 Crohn病。日臨 56：2349

- 2353, 1998
- 3) Homan W, Tang C, Thorbjarnarson B : Acute massive hemorrhage from intestinal Crohn's disease. Arch Surg 111 : 901-905, 1976
- 4) 小林絢三, 押谷伸英, 中村志郎ほか：臨床像からみた炎症性腸疾患。胃と腸 25：516-522, 1990
- 5) 富永雅也：Crohn病の臨床像の検討：166例における病型および病態と診断時の臨床所見との関連性。福岡医誌 83：6-20, 1992
- 6) 石川健二, 貞廣荘太郎, 向井正哉：大量下血で発症したCrohn病の1例。手術 51：1881-1886, 1997
- 7) Robert J, Sachar D, Greenstein A : Severe gastrointestinal hemorrhage in Crohn's disease. Ann Surg 213 : 207-211, 1991
- 8) Cirocco W, Reilly J, Rusin L : Life-threatening hemorrhage and exsanguination from Crohn's disease. Report of four cases. Dis Colon Rectum 38 : 85-95, 1995
- 9) Bruyns E, Lubbers E, van Tongeren J : Major haemorrhage in Crohn's disease. Neth J Med 22 : 67-71, 1979
- 10) Turnbull RJ, Fazio V, Hoffman G et al : Massive bleeding in Crohn's disease. Perspect Gen Surg 2 : 153-166, 1991
- 11) Belaiche J, Louis E, D'Haens G et al : Acute lower gastrointestinal bleeding in Crohn's disease : characteristics of a unique series of 34 patients. Am J Gastroenterol 94 : 2177-2181, 1999
- 12) 山本雅由：大量出血を伴ったクローン病の4例：治療法の検討を中心に。日本大腸肛門病会誌 48：446-451, 1995
- 13) Mellor J, Chandler G, Chapman A et al : Massive gastrointestinal bleeding in Crohn's disease : successful control by intra-arterial vasopressin infusion. Gut 23 : 872-874, 1982
- 14) McGarrinty T, Manasse J, Koch K et al : Crohn's disease and massive lower gastrointestinal bleeding : angiographic appearance and two case reports. Am J Gastroenterol 82 : 1096-1099, 1987
- 15) Pennington L, Hamilton S, Bayless T et al : Surgical management of Crohn's disease. Influence of disease at margin of resection. Ann Surg 192 : 311-318, 1980
- 16) 更科廣實, 横山正之, 斎藤典男ほか：Crohn病手術適応の変遷。臨外 50：907-913, 1995
- 17) Timothy E, Bowling JJ, Jameson GK et al : Enteral nutrition as a primary therapy in active Crohn's disease. Eur J Gastroenterol Hepatol 5 : 1-7, 1993
- 18) 平井郁仁, 古川尚志, 櫻井俊弘ほか：Crohn病の長期経過例の病勢の変動とその要因について。日消病会誌 95：524-533, 1998

Intestinal Crohn 's Disease in Shock with Acute Massive Hemorrhage
as the First Symptom ; Report of a Case

Mikio Yasumura, Tatsumi Iida, Masahiro Goto, Masanao Okada, Katsutoshi Murase,
Tomoo Mizutani, Naoki Futamura* and Kenichi Sakamoto*
Department of Surgery, JA Yoro Central Hospital
First Department of Surgery, Gifu University School of Medicine*

We report small intestinal Crohn 's disease presenting with acute major rectal bleeding as the first symptom of the disease. A 16-year-old boy was admitted with a history of bloody stools followed by a syncopal episode. After admission, esophagogastrosopy and sigmoidoscopy were conducted with normal results. Superior mesenteric arteriogram revealed the extravasation of dye into the lumen of bowel from ileal branches. After 10 units of blood were transfused, he was taken to surgery on the fourth hospital day. Changes characteristic of Crohn 's disease about 80 cm 40 cm proximal to the ileocecal valve were found and removed. Pathologic examination showed a 65- cm serial longitudinal ulceration and 2 small ulcers in the ileum. Microscopic sections showed transmural inflammation and multinucleated giant cells without central caseous necrosis. It is not generally appreciated that life-threatening hemorrhage may complicate Crohn 's disease. The boy remained well for 6 years and 7 months without recurrent bleeding or other complications.

Key words : Crohn 's disease, massive bleeding

[Jpn J Gastroenterol Surg 35 : 413 417, 2002]

Reprint requests : Mikio Yasumura First Department of Surgery, Gifu University School of Medicine
40 Tsukasa-machi, Gifu City, 500 8705 JAPAN
