

空腸壊死で発症した segmental arterial mediolysis の 1 例

石川県立中央病院一般消化器外科, 同 心臓血管外科¹⁾, 同 病理科²⁾

吉田 貢一 山田 哲司 森田 克哉 中村 寿彦
八木 真悟 北川 晋 中川 正昭 関 雅博¹⁾
片柳 和義²⁾ 車谷 宏²⁾

症例は 51 歳の男性 . 腹痛を主訴に来院し麻痺性腸閉塞の診断で入院したが , 保存的治療により改善せず手術を選択した . トライツ靱帯から約 40cm にわたる空腸に斑状の全層壊死を認め , 小腸部分切除術を施行した . 術後の血管造影では上腸間膜動脈 , および下腸間膜動脈領域の多発性動脈瘤を認めた . 膠原病の検索では陰性であった . 術後 43 日目に血行再建術を施行した . 切除された動脈瘤の病理学的所見で中膜の分節状の欠損を認め , segmental arterial mediolysis と診断した . 腹部大動脈臓器分枝動脈瘤の診断に際しては segmental arterial mediolysis の可能性を念頭に置き , より広範な動脈領域の検索が必要であると考え , 血行再建術についても積極的に検討すべきであると考えた .

はじめに

腹部大動脈臓器分枝動脈瘤は予後不良の腹部救急疾患である . この原因の 1 つとして , 近年 , segmental arterial mediolysis (以下 , SAM と略記) の概念が提唱されている¹⁾⁻³⁾ .

上腸間膜動脈 (以下 , SMA と略記) , および下腸間膜動脈 (以下 , IMA と略記) に多発する動脈瘤を有し , 動脈瘤による 2 次的虚血によると思われる空腸壊死による発症した SAM 症例の治療経験を報告する .

症 例

患者 : 51 歳 , 男性

主訴 : 右季肋部痛

既往歴 : 特記すべきことなし (開腹歴なし , 心血管系疾患の既往歴なし) .

家族歴 : 特記すべきことなし .

現病歴 : 2001 年 1 月 15 日除雪作業後に右季肋部痛が出現した . 当院内科受診し , 急性腸炎による麻痺性腸閉塞の診断で入院した . 保存的治療により改善を得られず , 1 月 22 日に手術の目的で当科に転科した .

当科紹介時現症 : 体温 36.8 , 血圧 142/86mmHg , 脈拍 72/分 . 整 . 代表のリンパ節は触知しなかった . 腹部はやや膨満し , 右季肋部痛は消失していたが臍部やや下方に圧痛を認めた . 筋性防御および反跳性疼痛はなく , 腫瘤も触知しなかった . 腸管の蠕動音はやや減弱していた .

当科紹介時血液生化学検査 : WBC 12,100/ μ l , CRP

20.4mg/dl , LDH 411IU/l と上昇していたが , BUN , ALP , GOT , GPT , CPK は正常域であった . 血液ガス分析ではアシドーシスを認めなかった .

腹部単純 X 線検査 : 小腸の拡張を認め腸閉塞像を呈していた (Fig. 1) .

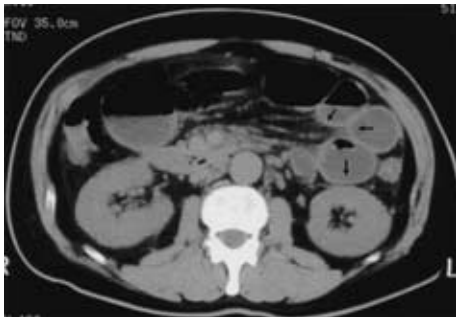
腹部超音波検査 : 小腸壁の肥厚と小腸内の腸液貯溜を認め , 小腸内残渣貯溜の所見も認めた . 腸管ガスにより SMA , IMA の描出はできずドップラー法による血流評価はできなかった .

腹部 CT 検査 : 小腸壁の肥厚は特に上部小腸で著明であった . 腫瘤およびリンパ節の著明な腫脹は認めな

Fig. 1 Abdominal roentgenogram showed dilated loops of small bowel.



Fig. 2 Abdominal CT scan showed dilated small bowel and the wall of proximal small bowel thickening (arrows)



かった (Fig. 2)。

身体所見、血液生化学および血液ガス検査では所見に乏しいが、開腹術の既往のない麻痺性腸閉塞であり画像所見では腸管の壊死も危惧されたため、原因の検索および加療の目的で緊急手術を施行した。

第1回目手術所見：トライツ靭帯部から約100cmにおよぶ空腸が虚血状態を呈し、特にトライツ靭帯から約40cmにかけて斑状の全層壊死に陥っていた (Fig. 3)。漿液性の少量の腹水を認めたが、胃～直腸に至る消化管、実質腹部臓器に腫瘍は認めず、リンパ節腫脹は認めなかった。SMA、およびIMA本幹の拍動は良好であった。小腸部分切除術を施行し、小腸端々吻合にて再建した。

空腸切除標本および病理所見：切除空腸は約120cm。口側から約90cmの連続した腸管の虚血変化を認め、特に口側から約40cmの部は固有筋層に至る壊死に陥り、所々に斑状の全層壊死を認めた (Fig. 4)。腸間膜の動静脈には循環不全による2次的変化と思われる微小血栓は認め、中枢側の血管病変の存在が疑われた。また血管炎の所見は乏しかった。

小腸部分切除後の経過は良好であったが、切除空腸の病理所見では空腸壊死の原因が判明せず、原因検索のため血管造影検査を施行した。

小腸部分切除術後血管造影検査：SMA領域に2か所、およびIMA領域に3か所の多発する動脈瘤を認めた。大動脈、腎動脈に動脈瘤は認めなかった (Fig. 5)。

小腸部分切除術後血液生化学検査：ノルエピネフリン値が1,140pg/mlと高値を示したが、エピネフリン値、ドーパミン値は正常域であり、レニン活性値、甲状腺ホルモン値、抗核抗体、リウマチ因子、PR3-ANCA、MPO-ANCA、抗DNA抗体はすべて正常域であった。

小腸部分切除後43日目に血行再建術を施行した。

Fig. 3 Intraoperative photography showed the jejunum was irregularly mottled by necrosis.

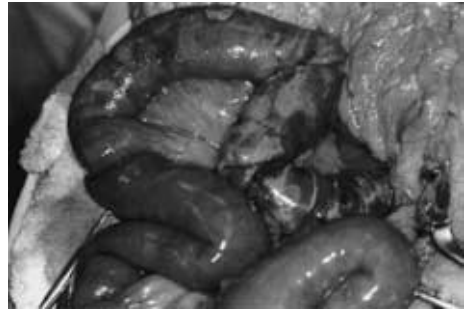
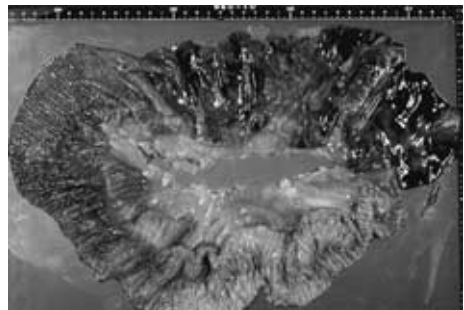


Fig. 4 Resected jejunum showed ischemic changes and oral side was necrosis.



第2回目手術所見：SMA起始部の動脈瘤に対しては、動脈瘤中枢側および末梢側を結紮後に動脈瘤前壁切除し、腎動脈下腹部大動脈から動脈瘤末梢のSMA本幹へ大伏在静脈をグラフトに用いてバイパス術を施行しSMAの血行を再建した。IMA領域の辺縁動脈の動脈瘤は結紮切除術を施行した。

切除標本および病理所見：切除されたSMA根部の動脈瘤前壁と横行結腸部辺縁動脈瘤(15×11×9mm)の中膜は分節状に欠損または高度に萎縮しており、内膜と外膜の肥厚を認めた。動脈瘤壁内の炎症所見は乏しく、内膜の解離は認めなかった (Fig. 6)。

術後経過は良好で現在は外来にて経過観察中である。

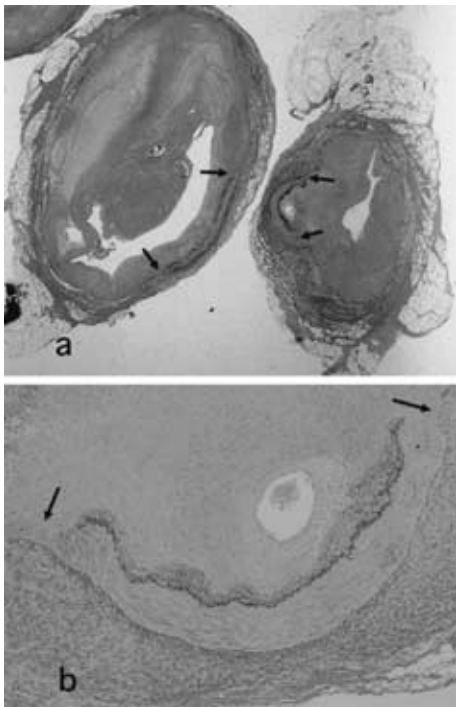
考 察

SAMは1976年にSlavinらが初めて提唱した概念であり、当初はsegmental mediolytic arteritisとしていたが、後にSAMと訂正された^{1)~3)}。現在までに報告されたSAM例は22例であり、このうち小児の冠動脈瘤症例(2例)を除く全ての症例(20例)が腹部大動脈臓器分枝の動脈瘤であることから、SAMは、腹部大動脈臓器分枝の動脈瘤の原因を考えるうえで大変に重

Fig. 5 Angiography after the first operation showed two aneurysms of the superior mesenteric artery (a : arrows) and three aneurysms of the inferior mesenteric artery (b : arrows)



Fig. 6 Histological examination (a : Elastica Van Gieson stain, original magnification, $\times 10$. b : Elastica Van Gieson stain, original magnification, $\times 100$). The media was disrupted (a, b : arrows)



要な概念となる可能性があると思われる (Table 1)⁷⁾⁻¹²⁾ . 稲田らは、過去に本邦で報告された腹部大動脈臓器分枝動脈瘤症例で病理所見の記載の明らかな報告のうち、直接検鏡により再検討し得た症例と自身が経験した 13 症例 (胃動脈瘤 7 例, 中結腸動脈瘤 5 例) の検討により全例に SAM と一致する所見を認めたとし、腹部大動脈臓器分枝動脈瘤の大部分が SAM により発生するとする見解の妥当性を支持する報告をしている⁴⁾ .

SAM の病理所見の特徴は、動脈瘤壁に認める分節状の中膜の残存所見であり、動脈壁内の炎症性変化が乏しいことである . この発生機序は中膜平滑筋細胞質が液泡化変性を起こし、これらの破裂により中膜が分節状に断裂し、外膜と中膜の結合部や中膜内へのフィブリンの沈着と血腫の形成に引き続き中膜の融解が起こることによるとされている . また、中膜融解の過程が起こったとする根拠として動脈壁内に炎症性変化がほとんど見られないことが挙げられている¹⁾⁻⁴⁾ . これらの病理学的変化を引き起こす誘因についてはまだ明らかになっていないが、血中カテコールアミン値の上昇を来す病態や膠原病などによる免疫異常などを指摘する報告も見られる^{2) 3)} . 自験例では膠原病を示唆する所見は得られなかったが、ノルエピネフリン値が高値を示した . しかし、採血手技、採血時間、そして術後であることなどのバイアスを考慮すると、自験例のノルエピネフリン値の評価は難しいと考えた .

自験例の空腸壊死は、SMA 血栓症に見られるような系統的な連続性壊死ではなく、斑状の壊死を呈していた . SAM は動脈瘤破裂による腹腔内出血や血腫で

Table 1 Reported case of segmental arterial mediolysis.

Case	Author(year)	Sex/ Age	Complain	Treatment	Surgical findings	Involved arteries	complication
1	Slavin(1976)	M/52	abdominal pain	none	*retroperitoneal hemorrhage	splenic, rt.colic, lt.colic	
2	Slavin(1976)	M/80	chest pain	none	*retroperitoneal hemorrhage	superior pancreaticoduodenal	postoperative state(prostate)
3	Slavin(1976)	F/73	abdominal pain	none	*mediastinal and retropleural hemorrhage	splenic, rt.colic, cystic, gastroduodenal, pancreaticoduodenal, gastroepiploic, lt.gastric, renal	rupture of thoracic aortic aneurysm
4	Slavin(1989)	M/87	abdominal pain	partial jejunectomy	jejunal necrosis	jejunal	
5	Slavin(1989)	M/70	dyspnea	none	*no remarkable	coronary	
6	Heritz(1990)	M/68	abdominal pain	partial omentectomy	intraabdominal hemorrhage	gastroepiploic, gastroduodenal, ileal, renal	
7	Armas(1992)	F/75	dyspnea	none	*hepatic congestion	hepatic	heart failure
8	Inayama(1992)	F/71	abdominal distension	lt. gastric aneurysmectomy	intraabdominal hemorrhage	lt.gastric, splenic	postoperative state(mitral valve)
9	Juvonen(1994)	F/70	abdominal pain	partial omentectomy	intraabdominal hemorrhage	gastroepiploic, splenic, pancreatic	SLE
10	Slavin(1995)	F/3	dyspnea	none	*ARDS, retroperitoneal hemorrhage	coronary	postoperative state(diaphragmatic hernia)
11	Slavin(1995)	F/64	abdominal pain	lt. colic aneurysmectomy	intraabdominal hemorrhage	lt.colic	
12	Slavin(1995)	F/66	rt. paresis	none	*pulmonary infarction	hepatic	postoperative state(meningoma)
13	Slavin(1995)	F/49	abdominal pain	rt. Hemicolectomy, partial ileectomy, partial jejunectomy	intraabdominal hemorrhage, bowel ischemia	ileocolic	
14	Slavin(1995)	M/73	hypovolemic shock	none	*intraabdominal hemorrhage	gastroepiploic	cerebral infarction
15	Ito(1995)	M/73	hypovolemic shock	none	*intraabdominal hemorrhage	splenic	polyarteritis nodosa
16	Kato(1996)	F/57	abdominal pain	inferior mesenteric aneurysmectomy	intraabdominal hemorrhage	inferior mesenteric	
17	Nagashima(1998)	M/39	abdominal pain	none	*intraabdominal hemorrhage	hepatic, colic	
18	Inada(1999)	F/69	abdominal pain	gastrectomy	retroperitoneal hemorrhage	lt.gastric	
19	Inada(1999)	F/63	abdominal pain	none	*intraabdominal hemorrhage	lt.gastric	
20	Inada(1999)	F/60	abdominal pain	transvers colectomy	intraabdominal hemorrhage	colica media	
21	Ozaki(2000)	M/52	abdominal pain	Rt. Hemicolectomy	retroperitoneal hemorrhage	Rt.colic	
22	Ozaki(2000)	M/56	abdominal pain	partial omentectomy, splenectomy	retroperitoneal hemorrhage	lt.gastroepiploic	

* Autopsy findings

発症することが多く、腸管の壊死で発症した症例の報告は過去に 1 例のみである。この症例の空腸漿膜の変化は連続分節状であったが粘膜面には斑状の血腫や浅い潰瘍性変化を認めたと報告されており、斑状の壊死が特徴的所見である可能性も考えられた²⁾。また、腹腔内出血や血腫で発症した症例の多くは突然の腹痛や急激な血圧低下などが主訴であることが多いが、空腸壊死で発症した前述の報告例では非特異的な腹痛が主訴であったため診断ができず、約 1 か月間の経過観察後に突然の腹痛と吐血を来した緊急手術となってい

る²⁾。自験例においても腹部所見が非特異的であったため診断が困難であった。SAM 症例の中でも腸管壊死で発症する症例の診断には難渋することが考えられ、特に血管造影の機会を逸しないことが必要であると考えた。

SAM 報告例には、複数の動脈領域に動脈瘤が多発している症例が多く、自験例においても、SMA 領域に 2 か所、IMA 領域に 3 か所に動脈瘤が多発していた^{1) 3) 5) 8) 11)}。発症した動脈領域のみならず、より広範な動脈領域を検索することの重要性が示唆される。また、

SAM 症例では、その発生機序から異時性多発の可能性も考えられるため長期にわたる経過観察も必要と考えた。

これまで報告された SAM 症例の治療では、腸管切除術か動脈瘤切除術のいずれかの方針がとられており、血行再建術が施行された症例の報告はない。自験例では、壊死空腸の切除術を施行した後、SMA 根部の動脈瘤に対し血行再建術を施行し良好な結果を得ることができた。血行再建術後のグラフトの開存率の問題など、今後は症例を重ねて検討する必要性はあると思われるが、少なくとも主要分枝に動脈瘤が認められる症例においては血行再建も積極的に考慮すべきであると考えた。

文 献

- 1) Slavin RE, Gonzalez-Vitale JC : Segmental mediolytic arteritis ; A clinical pathologic study. *Lab Invest* 35 : 23-29, 1976
- 2) Slavin RE, Cafferty L, Cartwright J : Segmental mediolytic arteritis ; A clinicopathologic and ultrastructural study of two cases. *Am J Surg Pathol* 13 : 558-568, 1989
- 3) Slavin RE, Saeki K, Bhagavan B et al : Segmental arterial mediolysis ; A precursor to fibromuscular dysplasia? *Mod Pathol* 8 : 287-294, 1995
- 4) 稲田 潔, 池田庸子, 前多松喜ほか : 胃動脈瘤および中結腸動脈瘤の病理 ; *Segmental arterial mediolysis . 病理と臨* 17 : 835-842, 1999
- 5) Heritz DM, Butany J, Johnston KW et al : Intraabdominal hemorrhage as a result of segmental mediolytic arteritis of an omental artery ; Case report. *J Vasc Surg* 12 : 561-565, 1990
- 6) Armas OA, Donovan DC : Segmental mediolytic arteritis involving hepatic arteries. *Arch Pathol Lab Med* 116 : 531-534, 1992
- 7) Inayama Y, Kitamura H, Kitamura H et al : Segmental mediolytic arteritis ; clinicopathologic study and three-dimensional analysis. *Acta Pathol Jpn* 42 : 201-209, 1992
- 8) Juvonen T, Niemela O, Reinila J et al : Spontaneous intraabdominal hemorrhage caused by segmental mediolytic arteritis in a patient with systemic lupus erythematosus ; an underestimated entity of autoimmune origin? *Eur J Vasc Surg* 8 : 96-100, 1994
- 9) 伊藤美津子, 大谷明夫, 中村泰行ほか : 顕微鏡的結節性多発性動脈炎に segmental mediolytic arteritis を合併した 1 剖検例 . *リウマチ* 35 : 693-698, 1995
- 10) Kato T, Yamada K, Akiyama Y et al : Ruptured inferior mesenteric artery aneurysm due to segmental mediolytic arteritis. *Cardiovasc Surg* 4 : 644-646, 1996
- 11) Nagashima Y, Taki A, Misugi K et al : Segmental mediolytic arteritis ; A case report with review of literature. *Pathol Res Pract* 194 : 643-647, 1998
- 12) 尾崎一典, 森川明男, 村上真基ほか : Segmental arterial mediolysis (SAM) による腹部内臓動脈破裂の 2 例 . *日消外会誌* 33 : 1367, 2000
- 13) Juvonen T, Rasanen O, Reinila A et al : Segmental mediolytic arteritis ; electron microscopic and immunohistochemical study. *Eur J Vasc Surg* 8 : 70-77, 1994

A Case of Segmental Arterial Mediolytic Found by Jejunal Necrosis

Kouichi Yoshida, Tetsuji Yamada, Katsuya Morita, Kazuhiko Nakamura,
Shingo Yagi, Susumu Kitagawa, Masaaki Nakagawa, Masahiro Seki¹⁾,
Kazuyoshi Katayanagi²⁾ and Hiroshi Kurumaya²⁾

Departments of General and Gastroenterological Surgery, Cardiovascular Surgery¹⁾
and Pathology²⁾, Ishikawa Prefectural Central Hospital

A 51-year-old man admitted with abdominal pain was diagnosed with paralytic ileus and treated conservatively. When symptoms persisted, we conducted a laparotomy and found 40 cm of the anal side from Treitz's ligament of the jejunum irregularly mottled by necrosis and conducted partial jejunectomy. Postoperative angiography showed multiple aneurysms in superior and inferior mesenteric arteries. Screening for collagen disease was negative. Blood circulation was reconstructed 43 days after the first operation. Histological evaluation showed the media of resected aneurysmal wall to be segmentally absent, leading to a diagnosis of segmental arterial mediolysis. In aneurysms of abdominal splanchnic arteries, it is important to consider screening these arteries as broadly as possible due to possible segmental arterial mediolysis and the necessity of blood circulation reconstruction.

Key words : segmental arterial mediolysis, aneurysm, acute abdomen

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 35 : 418-422, 2002]

Reprint requests : Kouichi Yoshida Department of Surgery, Anamizu General Hospital
TA 8 Kawashima, Hugeshi-gun, Ishikawa Pref, 927-0027 JAPAN