日消外会誌 35 (11): 1678~1682, 2002年

症例報告

膵体尾部動静脈奇形の1例

熊本大学医学部第1外科

藤川奈実香 井上 克彦 金光敬一郎 辻 龍也 平岡 武久 川筋 道雄

症例は53歳の男性.突然の上腹部痛を主訴に某院に入院.急性膵炎の診断にて治療を受けていたが症状軽快せず,血管造影にて膵動静脈奇形と診断された.一時症状軽快するが,再び上腹部痛出現し,加療目的で当科に入院となった.腹部造影CTで膵体尾部がenhanceされ,MRIT1強調画像で同部に多数のsignal void signを認め,速い血流の血管の存在が示唆された.カラードップラーエコーでは脾静脈に流入する動脈を認め,血管造影では動脈相で膵体尾部に網目状異常動脈が描出され,同時に門脈と脾静脈も描出された.膵体尾部動静脈奇形と診断し,膵体尾部,脾合併切除を行った.術中血行遮断に伴い門脈圧と門脈血中酸素分圧の低下を認め治療効果が確認できた.

はじめに

膵動静脈奇形(arteriovenous malformation:以下, AVMと略す)は非常にまれな疾患であるがいっるのう。近年,各種画像診断検査の発達に伴い報告が増加している。今回,我々は突然の上腹部痛を契機に術前診断し, 膵体尾部,脾合併切除にて根治できた膵体尾部 AVM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:53歳,男性 主訴:上腹部痛

既往歴:20歳 高血圧症 家族歴:兄 高血圧,脳出血

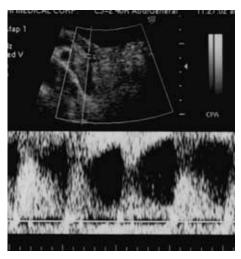
現病歴: 平成 10 年 3 月 18 日突然,上腹部痛が出現した.近医で急性膵炎の診断のもとに入院加療受けるも腹痛は持続した.CTにて膵血管性病変を疑われ,血管造影にて膵動静脈奇形と診断された.一時症状軽快し自宅療養したが,再び腹痛が出現したため平成10年6月18日精査加療目的で当科に入院となった.

入院時現症: 身長 174cm, 体重 54kg, 血圧 162/68 mmHg,脈拍 54/分,貧血,黄疸なく,心肺に異常なし. 左上腹部に自発痛あり,肝脾触知せず,腹部腫瘤なし. 腹部,側腹部に皮下出血,色素沈着なし.手掌紅斑,クモ状血管腫なし.体表および口腔鼻粘膜に毛細血管拡張なし,腹水の貯留所見なし.

入院時検査成績: WBC 5,800/µI, RBC 404×10⁴/

< 2002 年 7 月 24 日受理 > 別刷請求先:藤川奈実香 〒860 8556 熊本市本荘 1 1 1 熊本大学医学部第 1 外科

Fig. 1 Color Doppler echo shows the blood pulsative vessels flowing into the splenic vein.



 μ I,Hb 11.9g/dI,Ht 37.0%,Plts 25.8× $10^4/\mu$ I で軽度の貧血が認められた.血液生化学検査では膵 amylase 262 μ I,Lipase 272 μ I,Erastase-1 518 μ I以 膵 酵素が軽度上昇していた.

入院後経過:上腹部痛に対し急性膵炎としてプロテアーゼインヒビターの投与治療を開始し,平行して以下の画像診断検査を行った.腹部超音波検査(US): 脾静脈と交通する脈管を認め,カラードップラー検査では同血管から拍動波形が検出され動脈と思われた.肝硬変はみられず,膵臓の実質エコーに異常は認めな

2002年11月 41(1679)

Fig. 2 CT shows strongly enhanced area in the pancreatic body and tail.



かった (Fig. 1).

腹部 CT 検査: 膵体尾部に強く enhance される area を認め, 周囲組織も不均一に enhance された (Fig. 2) 肝硬変の所見はなく 脾腫もみられなかった.

MRI 検査: T1 強調画像において, 膵体尾部に速い 血流の存在を示す signal void sign^{25 y85}を認めた.

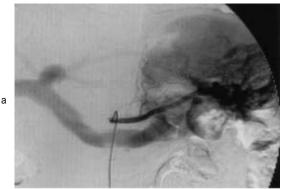
腹部 X 線造影検査:脾動脈造影では, 膵体部に一致して動脈相で網目状血管増生を認め, 早期に門脈が造影された 左胃動脈造影でも同様に動脈相で流入血管,網目状異常血管が描出され,門脈が造影された. 上腸間膜動脈造影,下腸間動脈造影からも同様の所見が得られた. 以上より 4 本の動脈から feeding artery を持つ膵体尾部動静脈奇形と診断した(Fig. 3).

また,内視鏡検査では食道静脈瘤は認められず,食道,胃,十二指腸に異常はなかった.以上の所見より総合して本症例は膵体尾部動静脈奇形と診断し,膵体尾部,脾合併切除を行うこととした.

術中所見:膵体尾部は表面の静脈が怒張しており, 膵臓と腸間膜は癒着していた.術中門脈圧,門脈血酸 素分圧を測定した.血流遮断前は,門脈圧 13.5mmHg, 門脈血酸素分圧 74.2mmHg であった.脾動脈,左胃動 脈遮断後は,それぞれ 12.5mmHg,68.2mmHgに低下 した.膵体尾部切除後はそれぞれさらに 8.8mmHg, 54.1mmHg まで低下した.これらから,動静脈奇形に より門脈圧上昇と門脈血酸素分圧の上昇がもたらされ ていたことがわかった (Fig. 4).

組織標本:脾静脈内には血栓ができており,表層近くには動脈と思われる異常血管が増生していた.その

Fig. 3 A splenic arteriogram (a) and a superior mesenteric arteriogram (b) shows a recemose vascular network in the pancreatic body, respectively and portal vein was demonstrated at the early phase in each arteriogram.



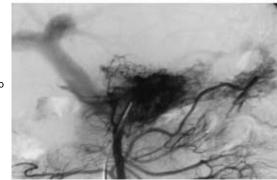


Fig. 4 The result of the portal blood pressure and portal blood O_2 partial pressure is shown. Both of them decreased by distal pancreatectomy.

SA: splenic artery, LGA: left gastric artery

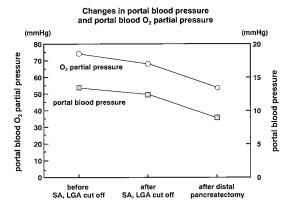
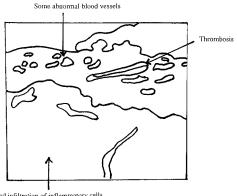


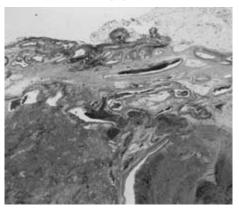
Fig. 5 Microscopic findings of the resected specimen. There is a thrombus in the splenic vein. Some abnormal blood vessels confirmed (H.E. stain, ×20).

(a)



Fibrosis and infiltration of inflammatory cells

(b)



血管を拡大してみると,弾性板が脆弱で途絶した異常 血管が認められた.一部の血管は内腔が閉塞していた. 膵実質内に,出血巣が主膵管近くまで認められ,正常 膵実質は認められず,また線維の増生が顕著で慢性膵 炎の像を呈していた(Fig.5).

老蓉

膵動静脈奇形はこれまで世界で約60例が報告されているにすぎないまれな疾患である.そのうち動静脈奇形が体尾部にある35例について報告する¹¹⁻³⁰〕.症状は消化管出血が31.4%,腹痛が20.0%,食道静脈瘤出血が5.8%である.消化管出血は膵動静脈奇形が直接十二指腸に出血したり,膵管内への穿破による十二指腸乳頭からの出血の場合もある.食道静脈瘤出血は,AVMが門脈圧亢進をもたらし食道静脈瘤を形成した場合に起こると思われる.自験例に見られたような腹痛は異常血管の閉塞による膵梗塞がおきた場合や,AVMから膵実質に出血をきたし,急性膵炎を起こした場合や,慢性炎症を起こすことなどにより出現するものと思われる.

診断はエコー,CT,MRIなど総合的に行うが,確定診断は腹部 X 線造影検査でによって行われる.腹部 X 線造影検査で動脈から直接門脈へ流入する血管,網目状異常血管を認めれば AVM と診断できる.このときfeeding artery は複数のこともあるので数本の動脈から造影検査をすること,また他の部位に AVM の合併がないことも確かめる必要がある.報告例での治療法別の症状寛解率,再発率について,症状寛解率は退院

Table 1 A review of 35 patients with arteriovenous malformation of the pancreas in literature.

a. clinical symptoms					
intestinal bleeding	: 11 cases (31.4%)				
abdominal pain	: 7 cases (20.0%)				
rupture of esophageal varices	: 2 cases (5.8%)				
asymptoms	: 9 cases (25.7%)				
others	: 9 cases (17.1%)				

b. treatment and remittent rate

treatmen	t	remittent rate	recurrent rate	unknown
pancreatectomy	9 cases	8 (88.9%)	1 (11.1%)	0
embolization	3 cases	2 (66.7%)	0	1
ligation of the vessels	1 cases	0	1 (100%)	0
conservative therapy	13 cases	8 (61.5%)	2 (15.4%)	3
others	9 cases			

remittent rate: cases of symptom free on discharge recurrent rate: cases of obvious recurrence

2002年11月 43(1681)

時に症状が消失した例とし,再発率は明らかに再発を 記載しているものとして検討した. 膵切除例の寛解率 は88.9%, 再発率は11.1%, 塞栓療法では寛解率66.7 %,再発例は報告なく,支配血管結紮例は1例のみで あったが,再発し出血死している.膵切除例は症状の 寛解や再発予防に極めて有用であるが、ほかの塞栓療 法や支配血管結紮例で寛解率が低いのは,複数のfeeding artery があったため完全に feeding artery を遮断 できなかったためと考えられる、術中に血流遮断がで きたか否かの評価として術中門脈圧,および門脈血中 酸素分圧の測定は膵切除による血流遮断効果の良い指 標になると思われた、膵 AVM は治療されないと膵実 質内出血や門脈圧亢進**をきたし,消化管出血や食道 静脈瘤の発症,破裂という危険因子を含んでいる.こ れらの合併症の予防を目指すためには膵 AVM の病態 から再発率の低い膵の外科的切除物が有用であると思 われる(Table 1).自験例では膵切除後膵炎の再発はな く、食道静脈瘤の出現も認めず、膵切除が有効であっ たと思われた.

本論文の要旨は第53回日本消化器外科学会総会(1999年2月京都)にて発表した.

文 献

- Halpern M, Turner AF, Citron BP: Hereditary hemorrhagic telangiectasia. An angiographic study of abdomiinal visceral angiodysplasias associated with gastrointestinal hemorrhage. Radiology 90: 1143 1149, 1968
- Moore JD, Thompson NW, Appelman HD et al: Arrteriovenous malformations of the gastrointestinal tract. Arch Surg 111: 381 389, 1976
- Lande A, Bedford A, Schechter LS: The spectrum of arteriographic findings in osler-weberrendu disease. Angiology 27: 223 240, 1976
- Brinley JL, Palubinskas AJ: Congenital arteriovenous malformation of the pancreas. Br J Radiol 50: 219 222, 1977
- 5) Nyman U: Angiography in hereditary hemorrhagic telangiectasia. Acta Radiol Diagn 18: 581 582, 1977
- 6) Chuang VP, Pulmano CM, Walter JF et al: Angiography of pancreatic arteriovenous malformation. Am J Roentgenol 129: 1015 1018, 1977
- 7) Lawhon NC: Radiologic Seminar CCVI: Pancreatic arteriovenous malformation. J Miss State Med Assoc 21: 184 185, 1980
- 8) Ishikawa T: Congenital arteriovenous malformation involving the pelvis and retroperitoneum.

Angiology 30: 70 74, 1979

- Gomes AS, Mali WP, Oppenheim WL: Embolization therapy in the management of congenital arteriovenous malformations. Radiology 144: 41 49, 1982
- 10) 野崎美和子,中島哲夫,鈴木文直ほか:頻回の下血を主訴とした膵頭部動静脈奇形1症例の画像診断、埼玉医会誌 18:567 571,1983
- 11) 石田洋一,澤武紀雄,北野 均ほか: 膵動静脈奇形 の1例.胆と膵 4:1559 1563,1983
- 12) Sawabu N, Ishida Y, Toya D et al: Pancreatic arteriovenous malformation presenting as interesting findings on endoscopic retrograde pancreatography. Dig Dis Sci 29: 678 682, 1984
- 13) 中澤 功,木村 亮,鈴木良一ほか: 膵動静脈奇形 の1例. 旭中病医報 7:145 148,1985
- 14)渡辺秀裕、須田雍夫、藤樹敏雄ほか: 膵動静脈奇形の1例.日消病会誌 82:2144 2148,1985
- 15) Kitagawa K, Takashima T, Matsui O et al: Marked hypervasucularity and early arteriovenous shunting with portal vein filling in chronic relapsing pancreatitis. Gastrointest Radiol 11: 56 60, 1986
- 16)野村益世、松川滋夫、安田敏男ほか: 膵動静脈奇形 の1例. 臨消内科 2:1355 1359,1987
- 17) 森田 穣 斎藤博哉 篠原正裕ほか: 膵動静脈奇形 の臨床・画像的検討. 胆と膵 9:605 613,1988
- 18) Uchino A, Ishino Y, Ohno M: Arteriovenous malformation of the pancreas associated with mesenteric varices; Case report and review of the literature. Radiat Med 7: 6 9,1989
- 19) Kato T, Takahashi M, Okawada T et al: Pancreatic arteriovenous malformation treated by transcatheter embolization: Report of a case with hepatocellular carcinoma. Radiat Med 9: 19 21, 1991
- 20) Katoh H, Kojima T, Okushiba S et al: Breeding esophageal varices associated with pancreatic arteriovenous malformation. World J Surg 15: 57 61, 1991
- 21) 布野健一,梅沢卓也,相沢共樹ほか: 膵動静脈奇形 の3症例.昭和医会誌 51:236 241,1991
- 22) Miura Y, Kato Y, Seiko R et al: Arteriovenous malformation of the pancreas associated with hepatocellular carcinoma. Dig Dis Sci 37: 1619 1623, 1992
- 23) Ohtani N, Kimoto K, Yoshida S et al: Pancreatic arteriovenous malformation with pancreatitis involving a pancreatico-venous fistula. Gastroenterol Jpn 27: 115 120, 1992
- 24) Kurosaki M, Hattori K, Minato Y et al : Asympto-

44(1682)

matic arteriovenous malformation of the pancreas. Dig Dis Sci 38: 1342 1346, 1993

- 25) 今野英一,宮本 岳,下谷麻里子ほか:カラードプラ法が病態把握に有用であった膵動静脈奇形の1 例.日消病会誌 92:1799 1803,1995
- 26) 赤木史郎,巻幡栄一,木本光則ほか:肝細胞癌に対する精査中,偶然発見された膵動静脈奇形の1例. 臨放線 40:725 727,1995
- 27) Hirai T, Ohishi H, Yamada R et al : Color doppler flow imaging of pancreatic arteriovenous malfor-

- mation. J ultrasound Med 14: 393 398, 1995
- 28) 小澤 広,田中 武,佐伯俊一ほか: 肝癌精査中に 偶然発見された無症候性膵動静脈奇形の1例.臨 消内科 12:139 142,1997
- 29) 青木哲哉 ,大川清孝 ,佐野弘治ほか:繰り返す下血 を主訴とした膵頭部動静脈奇形の1例. Gastroenteral Endosc 39: 1440 1444, 1997
- 30) 山本 博 松枝和宏 ,脇谷勇夫ほか:十二指腸出血 を来した膵動静脈奇形の1例. Gastroenteral Endosc 39: 226 232, 1997

A Case of Arteriovenous Malformation of the Pancreatic Body and Tail

Namika Fujikawa, Katsuhiko Inoue, Keiichirou Kanemitsu, Tatsuya Tsuji, Takehisa Hiraoka and Michio Kawasuji First Department of Surgery, Kumamoto University School of Medicine

The arteriovenous malformation of the pancreas we report is very rare. A 53-year-old man with sudden severe hypochondralgia was found in enhanced computed tomography scan showed to have a high-density area in the tail of the pancreas. Magnetic resonance imaging T1 weighted imaging showd a signal-void sign at the same area. Four arteriovenous shunts were detected in the body and tail of the pancreas of SMA, IMA, splenic artery and left gastric artery by angiography. We diagnosed arteriovenous malformation of the pancreas, and conducted distal pancreatectomy. During surgery, we confirmed decreased portal blood pressure and portal blood O₂ partial pressure before and after pancreatic resection. Surgical resection of the pancreas should be done to prevent portal hypertension by pancreatic AVM. Pancreatic resection has an extremely low recurrence of pancreatic AVM compared to transarterial embolization or surgical ligation of the feeding artery.

Key words: pancreatic arteriovenous malformation, portal hypertension

[Jpn J Gastroenterol Surg 35: 1678 1682, 2002]

Reprint requests: Namika Fujikawa First Department of Surgery, Kumamoto University school of Medicine 1 1 1 Honjyo, Kumamoto city, 860 8556 JAPAN