

空腸動静脈奇形による消化管出血により治療に難渋した 1 例

滋賀医科大学外科学講座

小松 周平 内藤 弘之 田村 祐樹 目片 英治
川口 晃 阿部 元 遠藤 善裕 来見 良誠
花澤 一芳 谷 徹

小腸出血は、出血部位の同定が難しく、診断、治療において難渋することが多い。症例は75歳の女性で、約半年の反復するタール便と貧血で来院した。小腸造影および注腸検査で、上行結腸に多発する憩室と、回腸末端に約2cmの隆起性病変を認め、回盲部切除術を施行した。しかし、一か月後に再びタール便が出現し、腹部血管造影を施行したところ、空腸第3動脈の動脈枝末梢に、動静脈奇形(AVM)が存在することが確認された。手術は、術直前に予め血管造影で動静脈奇形が確認された第3空腸動脈にカテーテルを留置し、術中に留置カテーテルからインジゴカルミンを注入して病変部位を含む支配領域を染色して切除する方法を行った。手術後の経過は良好で、現在、消化管出血を認めていない。小腸出血の診断には、血管造影が有効であり、術中カテーテル留置による病変部位を含む染色法が、開腹時の切除部位同定に極めて有効であると考えられた。

はじめに

小腸出血はまれな疾患で、特に血管性病変による場合は、診断治療に難渋することが多い。Boleyら¹⁾は高齢者の下部消化管出血の大量出血例に diverticulosis と arteriovenous malformation (以下、AVM と略す) が多く、合わせてその頻度は75%に至ると報告している。1960年、Margulisら²⁾が消化管出血に対して、術中血管造影を用いて初めてAVMを明らかにして以来、慢性消化管出血に選択的動脈造影が施行され、AVMの診断が容易となった。欧米では消化管出血の原因としてAVMを含めた血管性病変が多数報告されているが、本邦においては、いまだその例は少ない。

今回、我々は下血、貧血を主訴として来院し、出血部位の同定に難渋した結果、選択的動脈造影によりAVMと診断し、さらに術中選択的動脈造影および染色により、病変部位を確認し切除しえた貴重な症例を経験したので報告する。

症 例

患者：75歳、女性

主訴：下血

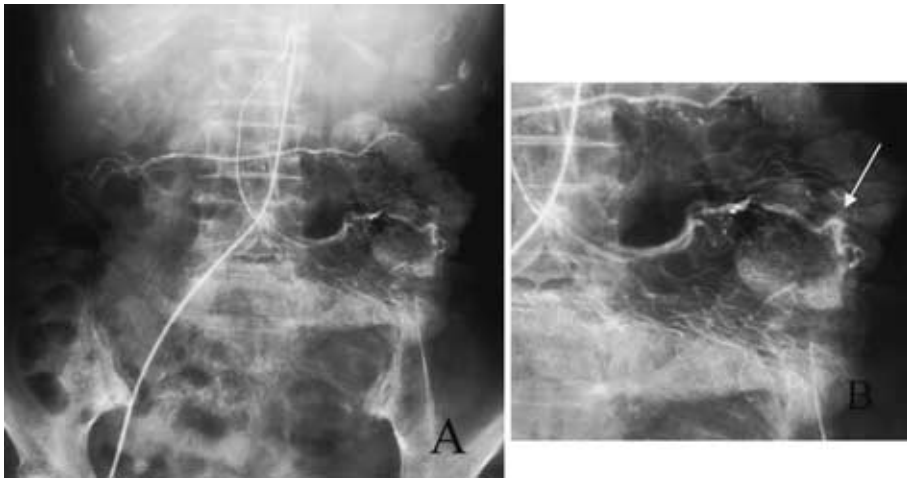
既往歴：20歳 虫垂切除術、66歳 C型肝炎

現病歴：平成10年7月頃から全身倦怠感、タール便を認め、同年9月に滋賀医大付属病院を受診し、高度の貧血を認めたため精査加療目的で入院となった。入院時の便潜血は強陽性を示したが、上部・下部消化管内視鏡検査で出血部位の同定はできなかった。また、出血シンチグラム(^{99m}Tc-RBC)を行ったが、異常集積を認めなかった。便潜血は入院後数日で陰性化し、貧血は輸血、鉄剤投与により改善されたため退院となった。その後も、時々、タール便を認め、同様の経過で入院退院を繰り返していた。

平成11年1月、同様の症状で再入院し、小腸二重造影を施行した。上行結腸に多発する憩室と、回腸末端に約2cmの隆起性病変を認めた。また、腹部血管造影を施行したが、明らかな出血性病変は認められなかった。したがって、多発した憩室を認める回盲部または回腸末端の隆起性病変が出

<2002年11月27日受理>別刷請求先：小松 周平
〒605 0981 京都市東山区本町15 749 京都第一赤十字病院外科

Fig. 1 (A) Superior mesenteric arteriogram demonstrated arteriovenous malformation of the jejunum. (B) Selective arteriogram. Arterial phase of superior mesenteric arteriography showed a dilated vascular tuft and an early draining vein.



血源である可能性が高いと判断し、平成 11 年 2 月 15 日回盲部切除術を施行した。念のため術中小腸内視鏡を挿入し、Treitz 靱帯から回盲部まで検索を行ったが、他に明らかな病変を認めず、粘膜面の変性部位や出血部位も認めなかった。術後標本で回盲部末端の隆起性病変は存在し、病理検査では腸壁の重積との診断であった。その後、消化管出血は消失し、貧血も改善したため退院となった。

平成 11 年 3 月、再度タール便が出現し、貧血を主訴に来院した。上・下部消化管内視鏡では、出血源を認めなかった。再度、出血シンチグラム ($^{99m}\text{Tc-RBC}$) を行ったが、異常集積を認めなかった。出血部位は小腸である可能性が高いと判断し、腹部血管造影施行した。その結果、空腸第 3 動脈の動脈枝末梢に、動脈相で拡張した血管の集簇 (Fig. 1A) と、動脈相から動脈に伴走する拡張した早期静脈還流を認め、空腸動静脈奇形 (arteriovenous malformation; 以下、AVM と略記) が認められた (Fig. 1B)。同部位が出血部位であると判断し、切除目的で入院となった。

入院時現症：意識清明、身長 137cm、体重 41kg、血圧 121/49、脈拍 54/min 整、眼瞼結膜に貧血を認めるものの、眼球結膜に黄疸を認めず。口腔粘膜、皮膚に色素沈着、血管拡張は認めなかった。肺音

は清明、心音は収縮期に汎収縮期雑音を認めた。腹部は平坦かつ軟、上腹部を中心に血管雑音を聴取した。肝、脾、腎は触知できなかった。

血液検査：軽度の貧血 (RBC $384 \times 10^4/\text{mm}^3$ Hb 11.1g/dl Ht 35.4%) を認めるが、生化学および凝固機能検査で特に異常値を認めなかった。

手術所見：平成 11 年 8 月 20 日に手術を施行した。手術に先立ち、腹部血管造影施行し、第 3 空腸動脈末梢の AVM を再確認した。この部位を術中に確認できるように第 3 空腸動脈内にカテーテルを留置しておいた。上腹部正中切開にて開腹した。第 3 空腸動脈の留置カテーテルよりインジゴカルミン希釈液 (原液 1cc を生食 10cc で希釈) を注入したところ動脈支配領域の空腸が全周性に染色された (Fig. 2)。染色部位より約 20cm 肛門側の空腸に切開を加えて内視鏡で内腔を検索したところ、腸管染色部位の粘膜面に色素の漏出は認めなかったが、点状出血とびらんが認められた (Fig. 2)。染色部位以外の粘膜では異変を認めなかった。慢性的な消化管出血の原因は、AVM によると判断された。同部位を切除し、空腸を端端吻合し手術を終了した。

病理標本：腸間膜対側で切開した小腸粘膜面では、径 2.5cm で全周性の浅い陥凹と出血を認めた

Fig. 2 Operative photograph demonstrates stained segment of small intestine (left)
Gross specimen (jejunum) using endoscopy showed a mucosal erosion (right)

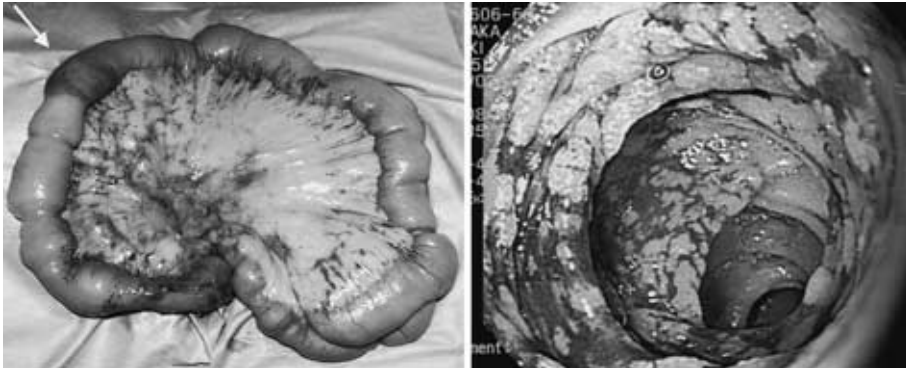
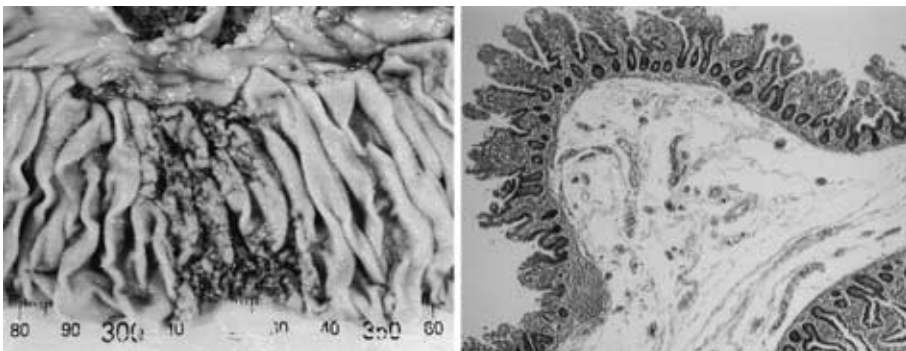


Fig. 3 Gross appearance of the resected specimen with many red spots on its surface (left) Microscopic findings of AVM in the jejunal submucosa. Histological examination of the resected specimen showed an increase of abnormal vessels in the submucosa (right)



(Fig. 3). 病理組織所見では、粘膜下層に多数の小血管の増生を認めた (Fig. 3). 炎症を伴い粘膜の脱落が起これば、容易にこれらの血管が破綻し出血することが想定された。

手術後の経過は良好で、3年経過した現在、消化管出血を認めていない。小腸出血の診断には、血管造影が有効であり、また、術中カテーテル留置による病変部位を含む染色法が、開腹時の切除部位同定に極めて有効であると考えられた。

考 察

小腸出血の頻度は少なく、Brileyら³⁾の報告では全消化管出血の5.5%であるが、急性の下部消化管出血に占める割合は30%と高い。下血の診断に際し、一般に上部消化管出血の場合は胃酸や硫化

水素の影響でタール様を呈し、また下部消化管出血は赤色調のことが多く、通常これらをたよりに上部・下部内視鏡検査がおこなわれるが、小腸出血に対しては直接診断が得られず、内視鏡検査は上部・下部消化管病変の除外診断としての意味合いが強い。小腸出血の診断が困難な原因は、部位的な問題と、原因疾患が、腫瘍性、炎症性、憩室、非特異的潰瘍、動静脈奇形 (AVM)、潰瘍性病変など多岐にわたることである。

消化管動静脈奇形 (AVM) は、欧米での1949年のGentryら⁴⁾の344例の血管性病変の検討から始まり、1960年Margulis²⁾が大腸のangiodysplasiaを術中血管造影で初めて診断し、本邦では1975年の下山田ら⁵⁾が報告して以来、選択的動脈

撮影や内視鏡検査法の進歩とともに報告例が増えている。外山ら⁶⁾によると消化管顕性出血例のうちAVMによるものは、1257例中3例(0.2%)であり、Meyerら⁷⁾によるとAVMの部位別頻度は右側結腸78%、空腸10.5%、回腸5.5%、十二指腸2.3%、直腸0.9%であるという。その特徴としては、間欠型の出血を呈し、主症状を欠き、合併疾患や全身徴候を有さないことから、病変部位の同定に難渋することが多い要因となっているものと思われる。

消化管AVMの組織発生については、先天的なものと後天的なものが考えられている。Boleyら¹⁾やMitsudoら⁸⁾の後天説によると、固有筋層の攣縮によってこれを貫通する静脈の内腔狭小化が生じ、このために静脈内圧が上昇、拡張、蛇行が生じ、precapillary sphincterの機能障害がおこり、最終的にarteriovenous(AV)shuntが形成されると提唱している。後天的動静脈奇形の組織学的特徴は、AVMが粘膜から粘膜下層までに存在し、一般に漿膜は侵されない。一方、Duray⁹⁾らの先天説によると、動脈圧効果によると考えられる静脈内膜の肥厚、および動脈が直接静脈に流入するのが認められ、さらに比較的大きなものをcongenital A-V malformationとしている。本症例は、粘膜下層に限局した多数の小血管の増生を認める(Fig. 3)ため、Durayらの、組織学的にAVMを粘膜下層から漿膜までの全層性に認めるという先天的要因を特徴とする先天説とは異なり、Boley、Mitsudoらの後天説の方が、病理学的特徴、年齢からも合致している。

小腸出血は、内視鏡で同定困難な部位にある消化管出血であり、その術前診断法として、まず、腹部血管造影¹⁰⁾、出血シンチグラム(^{99m}Tc標識赤血球法)¹¹⁾が施行されることが多い。血管造影法による出血源の検索は、0.5ml/min以上の出血があると血管外漏出として診断可能¹¹⁾であり、さらに出血点がわかれば動脈塞栓術をおこなうことが可能である。ただし、出血が持続していないと診断には至りにくい。一方、^{99m}Tc標識赤血球法は異常集積像として0.05~0.1ml/minの出血まで検出することが可能であり、静注時に出血が検出され

なくても経時的に撮影をおこなえば12~24時間利用できるというという利点がある。しかし、本症例のように出血シンチでも血管造影でも病変が同定されにくい場合は、出血時に迅速に血管造影をおこなうしか他に方法はないと考えられる。

小腸出血の術中の方針としては、シンチグラムの所見からある程度大まかな出血部位を同定し、選択的血管造影により、病変部の同定と、mappingを行い、切除範囲の決定に役立てるとするのが一般的である。しかし、術前から小腸出血と診断されていながら術中に病変を同定することが非常に困難で、切除しえずに再手術を要する症例もまれに存在し¹²⁾¹³⁾、これらの症例は、AVMや微小動脈瘤などの血管性疾患であることが多い。したがって、小腸出血は、術前の血管造影所見から術中出血部位同定の困難さを予測することが可能であるため、何らかの術中出血部位発見法を準備しておく必要がある。

小腸出血における術中出血部位同定法として橋本ら¹⁴⁾のマイクロコイル留置法、transillumination法¹⁵⁾、色素注入法(術中血管造影法)¹⁶⁾、術中内視鏡法、分節鉗子法¹⁷⁾、さらにこれらを組み合わせた方法が考えられる。いずれも、有用な方法であることは間違いがないが、これらの方法を組み合わせて実施しても術中病変同定に至らない症例が報告されているのも事実である¹²⁾。

今回、1回目の手術時点の血管造影や手術でAVMを確認できなかった原因は、AVMが間欠的な出血パターンを呈したからである。2回目の手術で病変部位切除に至ることができた理由は、出血時に迅速に血管造影をしてAVMを同定したこと、病変部位周囲の腸管染色に使うカテーテルをあらかじめ留置して手術を行ったからである。

今回、報告した空腸AVMに対する選択的血管造影および術中留置カテーテル腸管染色法は、小腸出血に対する治療戦略として極めて有効であると考えられる。

文 献

- 1) Boley SJ, Sammartano R, DiBiase A: On the nature and etiology of vascular ectasias of the colon.

- Gastroenterology 72 : 650 660, 1977
- 2) Margulis AR, Heinbecker P, Bernard HR et al : Operative mesenteric arteriography in the search for the site of bleeding in unexplained gastrointestinal hemorrhage : A preliminary report. Surgery 48 : 534 539, 1960
 - 3) Briley CA, Jackson DC, Johnsrude IS et al : Acute gastrointestinal hemorrhage of small-bowel origin. Radiology 136 : 317 319, 1980
 - 4) Gentry RW, Dockerty MB, Glagett OT et al : Vascular malformations and vascular tumors of the gastrointestinal tract. Int Abstracts Surg 88 : 281 323, 1949
 - 5) 下山弘明, 中田幸之助, 野口輝彦ほか : 消化管大量出血の1治療例(選択的動脈撮影にて診断し得た空腸血管奇形). 日消外会誌 8 : 294, 1975
 - 6) 外山久太郎, 岡部治弥, 比企能樹ほか : 消化管出血の臨床統計. 北里医 11 : 201 213, 1981
 - 7) Meyer CT, Troncale FJ, Galloway S : Arteriovenous malformation of the bowel : An analysis of 22 cases and a review of the literature. Medicine 60 : 36 48, 1981
 - 8) Mitsudo SM, Boley SJ, Sammartano RJ et al : Vascular ectasias of the right colon in the elderly : A distinct pathologic entity. Human Pathology 10 : 585 600, 1979
 - 9) Duray PH, Marcal JM Jr, Brand MH et al : Small intestinal angiodysplasia in the elderly. J Clin Gastroenterol 6 : 311 319, 1984
 - 10) Baum S, Nusbaum M, Blakemore W et al : Preoperative radiographic demonstration of intra-abdominal bleeding from undermined sites by percutaneous selective celiac and superior mesenteric arteriography. Surgery 58 : 797 805, 1965
 - 11) Alavi A, Dann RW, Baum S et al : Scintigraphic detection of acute gastrointestinal bleeding. Radiology 124 : 753 756, 1977
 - 12) 渡辺幸康, 豊島 宏, 坂東隆文ほか : 小腸大量出血 自験6例と本邦報告110例の検討. 臨外 43 : 397 404, 1988
 - 13) 尾形雅彦, 寺田紘一, 高野 篤ほか : 間欠的消化管出血をきたした回腸動静脈奇形の1例 本邦64例の考察. 消外 13 : 1559 1564, 1990
 - 14) 橋本琢生, 川瀬裕志, 林 裕之ほか : 動脈内留置コイルを指標とした術中腸管出血部位同定法. 腹部救急診療の進歩 11 : 629 633, 1991
 - 15) 楠 正人, 山村武平, 荘司康嗣ほか : 小腸出血性病変の治療方針. 消外 11 : 1333 1338, 1988
 - 16) Beaton HL : Small intestinal bleeding method for intraoperative localization. NY State J Med 82 : 171 174, 1982
 - 17) 高橋英雄, 若狭林一郎, 中坪直樹ほか : 出血性ショックにより救命し得た小腸動静脈奇形の1例. 外科診療 35 : 252 256, 1993

A Case of the Problematic Gastrointestinal Bleeding in T treatment Due to
Arteriovenous Malformation of the Jejunum

Shuuhei Komatsu, Hiroyuki Naitoh, Hiroki Tamura, Eiji Mekata, Akira Kawaguchi,
Hajime Abe, Yoshihiro Endo, Yoshimasa Kurumi,
Kazuyoshi Hanazawa and Tohru Tani
Department of Surgery, Shiga University School of Medicine

We report a case of arteriovenous malformation (AVM) of the jejunum with repeated intestinal bleeding, in which angiography was useful in localizing the responsible lesion. A 75-year-old woman reporting repeated bloody stool and anemia underwent initial surgery for a small polyp and multiple diverticulosis of the ileocecal lesion, detected by routine radiography. One month later, however, she again reported bloody stool for which routine gastrointestinal examinations and radionuclide blood scintigraphy failed to show the bleeding site. We therefore conducted selective mesenteric angiography that showed AVM at the jejunal branch. Prior to surgery, we catheterized for the feeding vessels. On laparotomy, we identified the segment by injection of methylene blue through the catheter, and resected the localized jejunal segment. The postoperative course was uneventful. Arteriovenous malformation should thus be considered as leading to repeated intestinal bleeding of unknown origin. Angiography may provide useful information in the diagnosis of this disease and intraoperative localization of the segment.

Key words : arteriovenous malformation (AVM) intestinal bleeding, angiography

【Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 224 228, 2003】

Reprint requests : Shuuhei Komatsu Department of Surgery, Kyoto Daiichi Red Cross Hospital
15 749 Honmachi, Higashiyamaku Kyoto, 605 0981 JAPAN