

症例報告

大量下血による出血性ショックより救命しえた 空腸 angiodysplasia の1例

つがる市立成人病センター外科¹⁾, 弘前大学第2外科²⁾

板橋 幸弘¹⁾²⁾ 馬場 俊明¹⁾²⁾ 加藤 智¹⁾ 佐々木睦男²⁾

症例は47歳の男性で、大量の下血とともに意識消失し、当院に救急搬送された。蘇生を開始する一方で、出血原因の検索を行ったが、上部・下部内視鏡検査で出血源を認めず、小腸出血が強く疑われた。当院では血管造影などの設備がなく、全身状態を安定させながら緊急手術を施行した。小腸の血性内容貯留はトライツ靱帯より50cm 肛側に境に遠位側に著明であり、同部位に径1cm 弱の腫瘤を触知した。その腫瘤の口側および肛側に腸鉗子をかけたところ、クランプした部位の腸管内容が緊満してきたため、出血源と考え、約10cm 小腸部分切除術を行った。切除標本では1.0×0.9cm の粘膜下腫瘍の中央表面に径4mm の露出血管を認め、病理所見にて angiodysplasia の診断を得た。ショックを伴う小腸出血の場合、腹部血管造影検査などの術前検査が施行困難であっても、全身状態を安定させながら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

小腸出血は比較的可成りな疾患であるが、しばしば大量下血の一因となり緊急処置を要する。今回、我々は大量下血による出血性ショックにて発症し、術中 segmental clumping にて出血部位を同定しえた空腸 angiodysplasia の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：47歳、男性

主訴：下血、意識消失

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：12歳で急性虫垂炎手術。

現病歴：平成16年12月夜、仕事から帰宅後、少量の下血を認めた。その後、めまいを感じ、大量の下血とともに意識消失し、当院に救急搬送された。

受診時現症：受診時は意識の回復がみられ、脈拍は100回/分、血圧は108/86mmHgであった。眼瞼結膜は貧血で、腹部はやや膨隆し、圧痛や筋性防御は認めなかった。

受診時血液検査：RBC 375万/ul, Hg 11.7g/dl で、TP 5.3g/dl であった。

ただちに蘇生を開始する一方で、出血原因の検索を行った。経鼻胃管チューブからの出血は認めず、下部内視鏡検査でも回腸末端までは異常は認められず、小腸出血が強く疑われた。

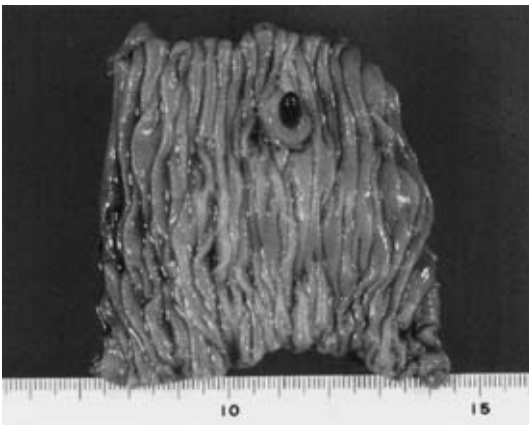
受診8時間後にはIr MAP 6E 輸血したにもかかわらず、末梢血所見はRBC 280万/ul, Hg 8.5g/dl と極度の貧血状態で、血圧も収縮期圧80mmHg 台であった。当院では腹部血管造影検査や出血シンチなどの設備もなく、また下血が続き全身状態が極めて不良であったため、救命を第1目的と考え、全身状態を安定させながら、かつ術中内視鏡の消毒滅菌を待って、翌日、緊急手術を施行した。

手術所見：正中切開にて開腹した。腹水や膿汁の貯留は認めなかった。小腸内には血性内容貯留がほぼ全長にわたって透見されたが、詳細に観察すると、凝血塊貯留はトライツ靱帯より50cm 肛門側のところを境に遠位側により著明であり、同部位に径1cm 弱の腫瘤を触知した。その腫瘤の口側および肛門側に腸鉗子をかけて一時的にクラン

Fig. 1 Segmental clamping of the upper jejunum by placing two clamps proximal and distal to a palpable mass. The clamped bowel segment acutely bulged full, which located the source of bleeding. The segment including the mass was resected.



Fig. 2 Submucosal protuberant mass (1.0×0.9 cm). A vessel 4 mm in diameter and 7 mm in length was exposed through the mucosa covering the mass.

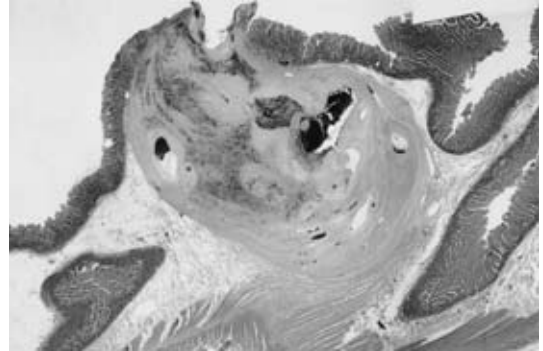


プシ、他病変の有無を検索したが特に異常を認めず、またクランプした部位の腸管が膨隆、緊満してきたため、出血源と考え、約 10cm にわたり小腸部分切除術を行った (Fig. 1)。

切除標本：1.0×0.9cm の粘膜下腫瘍様の隆起病変の中央表面に径 4mm、高さ 7mm の露出血管を認めた (Fig. 2)。

病理組織学的検査所見：空腸粘膜下の腫瘍に不規則な血管腔を認める。血管壁は硝子化しその周囲に線維化と軽度の炎症性細胞浸潤を認める。血

Fig. 3 Low-power cross section of the resected jejunal segment, showing a nodular submucosal mass, in which there are tortuous vessel lumens with hyaline-degenerated walls. One large vessel is exposed open through the mucosa (H&E, ×2).



管の一部は粘膜に達して露出している。Angiodysplasia の診断を得た (Fig. 3)。

術後経過は良好で、術後 16 日目に退院した。

考 察

血管病変に起因する腸疾患は、主として虚血性腸疾患、血管形態異常、血管性腫瘍病変の 3 型に分類される¹⁾。その中でさらに血管形態異常は、血管異形成 (angiodysplasia；以下、AGD)、動静脈奇形 (arteriovenous malformation；以下、AVM)、Dieulafoy's vascular malformation に分類され¹⁾、いずれも比較的まれな疾患ではあるが、消化管出血の原因となりうることもあるため、臨床的には重要な疾患として認識されている。1990～2005 年の医学中央雑誌において、索引用語を「小腸」(空腸、回腸)、「血管異形成」(angiodysplasia；以下、AGD)、「動静脈奇形」(arteriovenous malformation；以下、AVM)、「Dieulafoy's vascular malformation」として検索したところ、AVM が 34 例と最も多く、次いで Dieulafoy's vascular malformation が 10 例、AGD が 9 例であった。

今回、我々の症例は病理組織学的に AGD と診断されたが、これまでは腸管の血管形態異常の病型分類として、Moore ら²⁾ は年齢や遺伝性の有無、病変部位や肉眼的形態などから 1 型から 3 型までに分類していた。1 型は右半結腸に孤立性、限局性に存在し術中は視触診でわからないもの、2 型は

Table 1 Intraoperative diagnostic methods for the source of massive small intestinal bleeding

Inspection and Palpation	For any translucently visible or palpable lesion.
Small Bowel Endoscopy	With/without enterotomy for any possible intraluminal lesion.
Transillumination	With the overhead lights in the darkened theater or the emission light from the endoscope to outline or silhouette any possible intramural lesion.
Segmental Clamping	At the bowel parts proximal and distal to any possible lesion to examine bulging by blood accumulation.
Enterotomy Incision	At 60 cm anal to the oral limit of blood retention to directly inspect the bowel lumen for any possible lesion.

主に小腸に存在しやや大きくしばしば視診が可能なもの、3型は点状の血管腫で遺伝性出血性血管拡張症 (Rendu-Osler-Weber syndrome) とされるものである。しかし、実際にはこのような術前の臨床像や画像所見から厳密に区別することは難しい場合が多く、最近では病理組織学的検査所見を加味することで、AGDとAVMを厳密に鑑別できるようになってきた³⁾。すなわち、AGDの病変は、組織学的には粘膜から粘膜固有層に限局し、拡張した静脈や細静脈、毛細血管からなり、AVMの病変の主座は腸管全層に及び、比較的大きな静脈と動脈から構成され、両血管間には吻合ないし移行像が認められることが特徴的であるとされている。

小腸の血管形態異常の診断に関しては、腹部血管造影が有用で、他疾患との鑑別も可能であり、また病変部位や病変数を確認することも可能であるが、実際には非出血時の施行の場合は病変が描出されない場合も多い。また、血管造影検査で部位が同定されても、その後の外科手術にあたっては、術中に漿膜側から病変部位を確認することが難しい場合があるため、術前の腹部血管造影検査で、病変部の支配動脈の末梢にマイクロコイルを留置して術中透視で病変部位を同定したり⁴⁾、さらに病変部の支配動脈に留置した血管造影用カテーテルから術中に色素を注入し病変部腸管を染色することで切除範囲を同定したという報告も認められる⁵⁾。その他の術前の画像診断として、出血シンチグラフィは活動性出血の有無や出血部位の同定に有用な場合があるが、出血原因の診断は困難であり、またバリウムを用いた小腸造影X線検査も無力な場合が多い。緊急時および待機的検査のいずれにおいても腹部血管造影検査が必要不可欠

と思われる。また、最近では小腸内視鏡検査にて術前に病変部位を同定し、点墨やクリッピングでマーキングして手術を施行したという報告もみられるようになってきた^{6,7)}。

しかしながら、本症例のように大量下血による出血性ショックにて発症することがあり、血行動態を安定させるなどの全身管理が第1に必要なことが少なくない。そのうえで、腹部血管造影検査などの原因検索を行うことになるが、各医療機関において血管造影検査などの設備がない場合はそれらが実施可能な施設に転院して精査加療する必要がある。当院では血管造影検査などの設備がなく、また本症例は輸血や輸液などを施行しても全身状態が安定しなかったため、転院搬送ができる状況になく、救命を第1目的に考え、緊急開腹術を行った。術前に血管造影検査が施行できない場合や施行しても所見が得られない場合は術中検索に委ねることになるが、原因特定はしばしば困難であることが多い。術中検索方法をTable 1に示すが、その中では術中内視鏡検査が最も有効とされている。

本症例のように、ショックを伴う小腸出血の場合、各医療機関によっては腹部血管造影検査などの術前検査が施行困難であっても、全身状態を安定させながら時期を逸することなく、開腹して術中検索に委ねることも必要であると思われた。

なお、本論文の要旨は第60回日本消化器外科学会定期学術総会(2005年7月、東京)にて発表した。

文 献

- 1) 古畑智久, 平田公一, 秦 史壮ほか: 血管病変に起因する腸疾患の分類. 消外 28: 17-23, 2005
- 2) Moore JD, Thompson NW, Appelman HD et al: Arteriovenous malformations of the gastrointestinal tract. Arch Surg 111: 381-389, 1976

- 3) 岩下明徳, 尾石樹泰, 八尾隆史ほか: 腸管の血管性病変の病理学的鑑別診断. 胃と腸 **35**: 771—784, 2000
- 4) 中川泰生, 大平雅一, 竹内一浩ほか: 空腸 angiodysplasia の1切除例. 日臨外会誌 **64**: 3082—3086, 2003
- 5) 小松周平, 内藤弘之, 田村祐樹ほか: 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. 日消外会誌 **36**: 224—228, 2003
- 6) 斉藤典才, 関 誠, 上野雅資ほか: 術前に内視鏡観察しえた小腸 angiodysplasia の1例. Gastroenterol Endosc **40**: 1998—2003, 1998
- 7) 豊見山良作, 金城福則, 川根真理子ほか: 術前に内視鏡診断しえた空腸動静脈奇形の1例. 日消病会誌 **99**: 1258—1260, 2002

Massive Life-threatening Gastrointestinal Bleeding and Shock in a Patient with Angiodysplasia

Yukihiro Itabashi¹⁾²⁾, Toshiaki Baba¹⁾²⁾, Satoru Kato¹⁾ and Mutsuo Sasaki²⁾

Division of Surgery, Tsugaru Adult Disease Center Hospital¹⁾

Department of Surgery, Hirosaki University School of Medicine and Hospital²⁾

A 47-year-old man passed a massive melena and collapsed. When brought to the hospital by ambulance, he recovered consciousness. Shock resuscitation by intravenous therapy including blood was given. Immediate upper-or lower-GI endoscopy to locate the source of the hemorrhage identified no active bleeding site within the reach of the endoscope, which led to a high suspicion of small intestinal bleeding. Angiography or radio nucleotide imaging was not available in the hospital. Nonetheless, the difficulty encountered in stabilizing the hemodynamics with fluid therapy served as a diagnostic test for detecting continuing bleeding. After preparing for intraoperative enteroscopy, an emergency surgery to prevent death was performed 12 hrs after admission. On laparotomy, a much more voluminous dark reddish content was translucently seen in the jejunum 50cm distal to the ligament of Traitz, where, in the bowel wall, a 1-cm mass was palpated. A pair of intestinal clamps was applied proximal and distal to the mass. Then, very acutely, the clamped segment began to bulge, which precisely localized the actual bleeding site. A 10-cm segment of the bowel including the mass was removed. The resected specimen revealed an exposed blood vessel 4mm in diameter on the mucosa overlying a 1.0 × 0.9cm submucosal mass. Histopathology of the mass revealed angiodysplasia. Emphasis on the accurate diagnosis of a massive GI bleeding by angiography is irrefutable. Still, in the presence of life-threatening hemorrhage, life-saving surgery should not be postponed even when the exact cause of bleeding is not clear.

Key words : angiodysplasia, intestinal bleeding, massive GI bleeding

[Jpn J Gastroenterol Surg **39** : 1414—1417, 2006]

Reprint requests : Yukihiro Itabashi Department of Surgery, Hirosaki University School of Medicine
5 Zaifu-cho, Hirosaki, 036-8562 JAPAN

Accepted : December 16, 2005