

症例報告

## Segmental arterial mediolysis による中結腸動脈瘤再破裂で 腹腔内出血・下血を来した1例

一宮市立市民病院外科

大屋 久晴 永田 二郎 森岡 祐貴  
間瀬 隆弘 橋本 昌司 本田 一郎

症例は56歳の男性で、下腹部痛・意識障害で当院消化器内科を受診。CTで腹腔内出血を指摘され入院。保存的治療の後に退院となった。退院3週間後に下血・意識障害にて当院救急外来受診となった。CTでは横行結腸に接して壁の造影効果を伴う95×64mmの腫瘤を認め、内部に一部造影剤の漏出を認めた。血管造影検査では中結腸動脈左枝に数珠状の血管とその末梢に動脈瘤を認めた。塞栓術が試みられたがカニューレーション不能のため、外科紹介となった。血管造影検査所見からsegmental arterial mediolysis(以下、SAM)と診断し、緊急手術を行った。開腹所見では脾彎曲部の横行結腸に接した長径9cmの腫瘤を認めた。これを含め、結腸部分切除術を施行。腫瘤は二つの仮性動脈瘤で形成され、片方の仮性動脈瘤が横行結腸に穿破した潰瘍形成を認め、これが下血の原因と考えられた。病理組織学的検査結果ではSAMによる中結腸動脈瘤再破裂と診断された。

### はじめに

腹部内臓動脈瘤破裂は突然の腹痛を来し、ショック状態に陥る疾患である。その原因はさまざまであるが、その原因として近年segmental arterial mediolysis(以下、SAM)の報告例<sup>1)~7)</sup>が増加している。今回、我々はSAMによる中結腸動脈瘤再破裂で腹腔内出血・下血を来した1例を経験した。本症例につき若干の文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：56歳、男性

主訴：下血、意識障害

既往歴：前立腺瘤・骨転移。

現病歴：平成20年3月嘔吐で発症、翌日下腹部痛・意識障害にて当院消化器内科を受診。CTにて腹腔内出血を指摘され、入院となり保存的に治療が行われ第25病日退院となった。退院3週間後より下血を伴うようになり、意識障害を来して当

院救急外来受診となった。

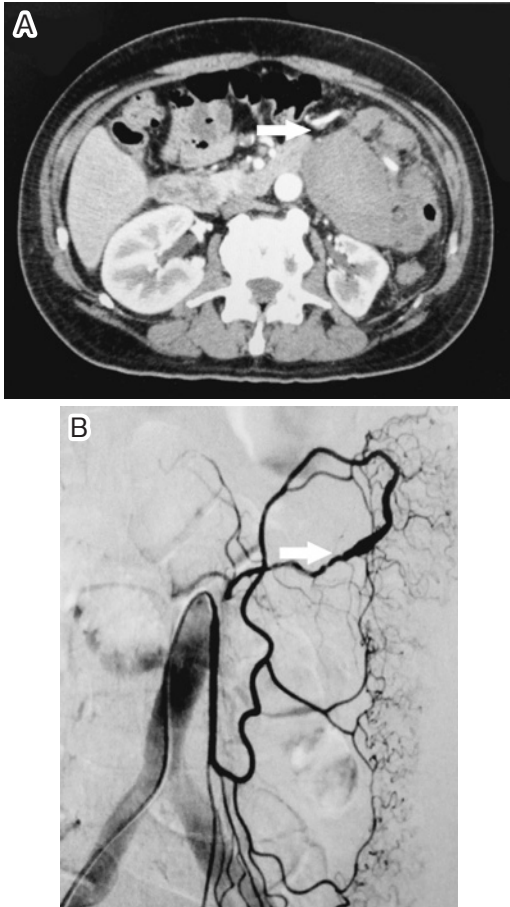
入院時現症：身長160cm、体重57.3kgで、血圧は89/64mmHg 脈拍93回/分。腹部は平坦で軟、左上腹部に圧痛を認めたが反跳痛・筋性防御は認めなかった。

血液生化学検査所見：血液検査では赤血球 $239 \times 10^4/\mu\text{l}$ 、Hb 7.2g/dlと貧血を認め、白血球 $18,400/\mu\text{l}$ 、CRP 0.80mg/dlと上昇を認めた。

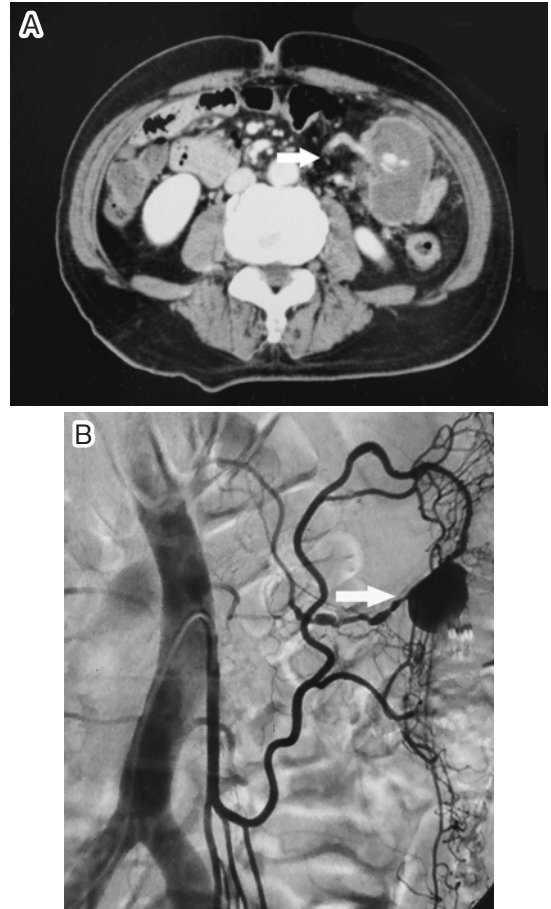
前回入院時の腹部CT造影・血管造影検査所見：腹部CTでは脾体尾部の左側に76×57mmの内部均一の腫瘤を認めた。腫瘤には造影される血管の流入を認めている(Fig. 1A)。また、血管造影検査が施行されており、中結腸動脈左枝に数珠状の動脈壁不整を認めているが、造影剤の血管外漏出は認めていない(Fig. 1B)。

今回腹部CT造影・血管造影検査所見：今回、受診時のCTでは脾体尾部の左側で脾彎曲部の結腸に接して壁造影効果を伴い内部がfluid densityの95×64mmの腫瘤を認め、一部造影剤の血管外漏出を認めた。腹腔内貯留液は認めなかった(Fig. 2A)。また、血管造影検査では中結腸動脈左枝に数

**Fig. 1** Abdominal CT scan showed that the tumor came in contact with transverse colon, which size was 76×57 mm. There was no extravasation (A). Angiography showed that left branch of middle colic artery was in shape of beads (B).



**Fig. 2** Abdominal CT scan showed that the tumor came in contact transverse colon, which size was 95×64 mm and had clearly border. In addition to that, we recognized the extravasation of contrast medium to the tumor (A). Angiography showed that left branch of middle colic artery was in shape of beads and aneurysm was formed there (B).



珠状の血管およびその末梢に動脈瘤を認めた (Fig. 2B). 塞栓術が試みられたがカニューレシオン不能のため、外科紹介となった。血管造影検査の所見からSAMと診断し、緊急手術を行った。

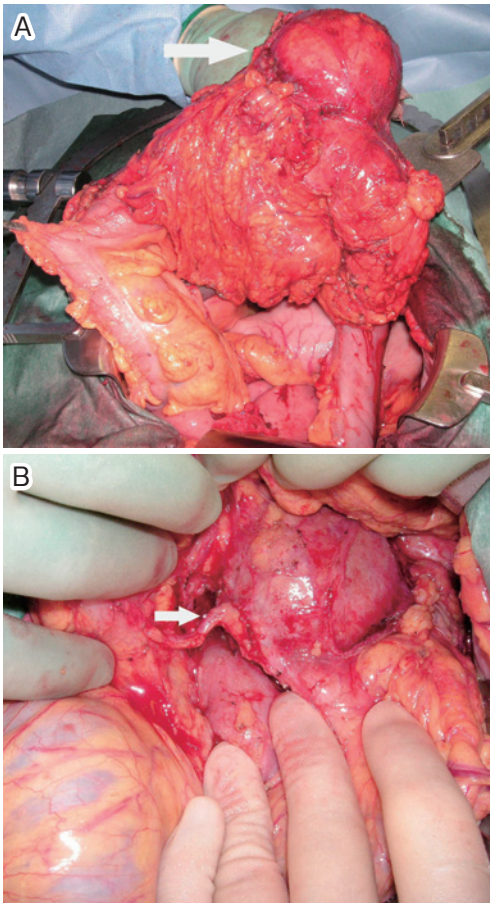
手術所見：全身麻酔下に上腹部正中切開にて開腹すると脾彎曲部近くの横行結腸に接した長径約9cmの腫瘤を認めた。腫瘤とともに横行結腸を剥離授動した。剥離をすすめると腫瘤に流入する血管が中結腸動脈左枝であることを確認し結紮切離した (Fig. 3A, B)。腫瘤を含め結腸部分切除を行い、手術を終了した。

切除標本：肉眼標本では、腫瘤は二つの仮性動

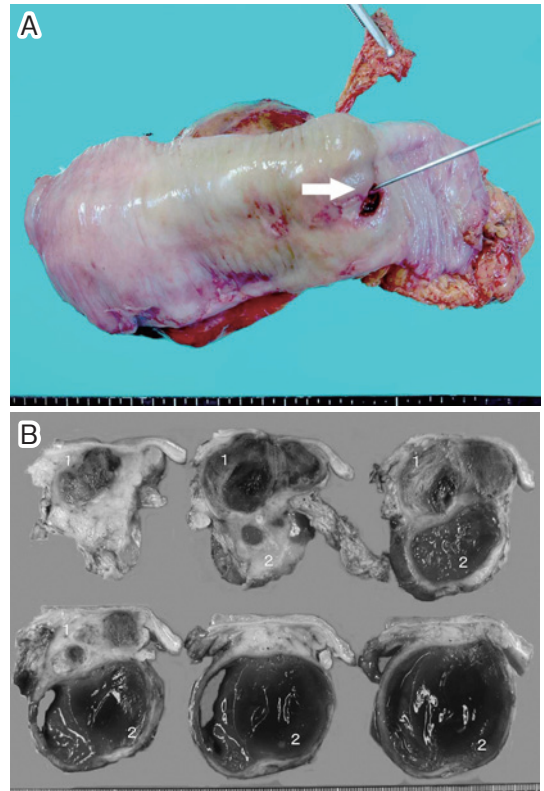
脈瘤・血腫で形成されており、一つの仮性動脈瘤が横行結腸に穿破する形で潰瘍形成を認めこれが下血の原因であり、中結腸動脈瘤の再破裂と考えられた (Fig. 4A, B)。

組織学的検査所見：組織学的に腫瘤は血腫であり、結腸粘膜に露出し潰瘍・腸管壁欠損を認め、出血源になっていたと考えられた。血管壁中膜にはフィブリン・浸出を伴った間隙を伴う分節状・島状の融解と残存を認めた。比較的外膜の保たれており、外膜の拡張 (medial gap) を認めた。なお、

**Fig. 3** Operation finding was revealed that the tumor which has a diameter 9 cm came in contact transverse colon located under splenic flexure (A). Left branch of middle colic artery was feeding the tumor (B).



**Fig. 4** The resected specimen was revealed that the tumor came in contact transverse colon, melena was colonic ulcer caused by rupture of pseudoaneurysm (A). There is two hematomas in the tumor (B).



壁内炎症所見は認めなかった (Fig. 5A, B). 以上より, SAM による中結腸動脈瘤再破裂と診断した.

術後経過: 術後臍液瘻を合併したが, 第33病日より食事を開始し, 第40病日に退院となった. 以後, 外来定期通院・画像検査が施行されているが再発は認めていない.

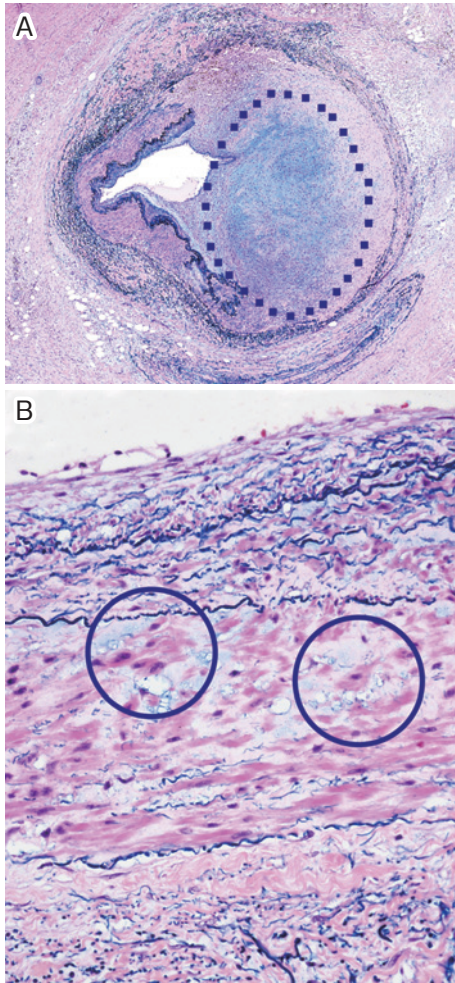
### 考 察

腹部内臓動脈瘤は比較的まれな疾患であり, Stanley ら<sup>8)9)</sup>は1,118例の腹部内臓動脈瘤の検討で, 脾動脈瘤 656例 (58.7%), 肝動脈瘤 227例 (20.3%), 上腸間膜動脈瘤 89例 (8.0%), 胃および

胃大網動脈瘤は 53例 (4.9%), と報告している. 上腸間膜動脈領域では空腸動脈が最も多く, 中結腸動脈, 回腸動脈と続くと考えられる. 腹部内臓動脈瘤の症状としては破裂例の多くが突然の腹痛で発症し, その後ショック状態に陥るとされ, 上腹部不快感に続く心窩部痛が 90% 以上, 動脈瘤触知が 50%, 悪心・嘔吐・消化管出血はまれと報告されている.

近年, 腹部内臓動脈瘤の原因として動脈硬化, 外傷, 先天性形成不全, 感染・免疫異常による血管炎などが考えられる<sup>10)</sup>が, 近年 SAM の報告が散見される. SAM については, 1949年最初に Gruenwald<sup>11)</sup>が新生児の冠動脈疾患でこの病態を報告している. 腹部領域では 1976年に Slavin ら<sup>1)</sup>が動脈瘤と腹腔内出血の 3 症例で病理組織学的に

Fig. 5 A: In a dashed line, Histopathological findings showed hematoma within the dissecting tunica media (VB・HE staining×40). B: Tunica media remaining in the form of islands, and Vacuolization of smooth muscle cells was demonstrated in the circle (VB・HE staining×400).



動脈瘤の分節状・島状の中膜残存特徴を認め、segmental mediolytic arteritis という名称で最初に報告した。後に、Arms らが1992年に炎症所見を認めないことがこの病態の病理組織学的な特徴であるとして、現在の segmental arterial mediolysis に呼称を改めた。本邦でも SAM にあたる適切な日本語訳はなく、学会・論文などでも SAM の呼称で発表や討議がされている。

SAM の原因については明らかにされていない

が、非炎症性・非動脈硬化性であることから、①カテコラミン・エンドセリンなどの血管作動物質による血管攣縮が原因とする説、②膠原病などの免疫異常とする説、③最近では罹患血管の分布・外見上の相似から線維筋性異形成, fibromuscular dysplasia (FMD) の前駆病変ではないかとする報告も見られる。SAM の病理組織学的特徴は、1) 中膜の空胞変性・融解による動脈瘤の分節状・島状の中膜残存 (medial island), 浸出・フィブリンを伴った間隙, 2) 拡張を認める外膜が保たれる一方で内膜の破綻していること (medial gap), 3) 壁内炎症所見・粥状硬化所見がないこと, などがあげられる。稲田<sup>12)</sup>は病理組織学的な発生過程を以下のように推測している。まず、中膜の平滑筋細胞に水泡化が起これ、それらが癒合・拡大し分節状の中膜融解が始まり、滲出やフィブリン沈着を伴った間隙形成が見られるようになる。やがて、内弾性板の断裂が生じてこの状態で内(中)膜の断裂が起これ、動脈壁が解離すると残された外膜が拡張して動脈瘤が形成され、特徴として動脈瘤壁に島状の中膜残存がみられる。これは、動脈壁のあちこちで中膜の融解が不規則に起こるためであるとし、大動脈で通常見られるような解離性動脈瘤とは異なっていると述べている。また、SAM の病態が広く知られておらず、病理組織学的診断には病理医の豊富な知識と経験が必要とされるが、病理組織学的には Alcian blue 染色検査による中膜の空胞形成の証明が有用と報告<sup>12)</sup>されている。

内山ら<sup>2)</sup>は病理組織学的検査所見が得られない SAM の臨床的診断基準として、①中高齢者、②炎症変化・動脈硬化性変化などの基礎疾患がないこと、③突然の腹腔内出血で発症すること、④血管造影検査にて血管に数珠状の不整な拡張と狭窄 (beading and narrowing sign と呼ばれる数珠状変化) を認めることを挙げている。SAM は腹部大動脈から分岐する中型筋性動脈およびその分枝の動脈に分節的に中膜壊死が起これ、解離性動脈瘤形成し破裂する疾患である。その特徴は単一の動脈系にのみならず広い範囲に分布し、さまざまな太さの動脈に分節的に起これるため、27~35%

に複数の病変部を有すると報告される<sup>3,4)</sup>。これまで、破裂例に関しては緊急処置の対象となり、診断もかね血管造影検査を施行し、活動性の出血・出血点を認めた場合にはカテーテル治療の良い適応と考えられる。カテーテル治療困難症例や不成功であった場合は速やかに手術に移行する必要がある。手術は、動脈結紮切除術・血腫除去術・支配領域の周囲臓器を含めた切除術があり、未破裂例に関しては腹腔鏡下動脈瘤切除<sup>5)</sup>も報告されている。

本例は前回入院時である初回破裂時、腹腔内出血の診断で当院消化器内科にて治療がなされ、血管造影検査で数珠状の動脈壁不整を指摘されているが、SAMの診断には至っていない。しかし、前回入院時も動脈壁不整に対し塞栓術が検討されており、病変の部位から塞栓術は困難とされ造影剤の血管外漏出がないことから補液・安静の保存治療のみ施行され、状態が安定し退院となっていた。これまでも、破裂例で保存治療のみで軽快したとする報告例がみられる<sup>4,6)</sup>。偶然に見つかった未破裂例において、経過観察中に以前より存在していた動脈瘤が消失したとする報告例<sup>7)</sup>があることから、破裂にいたらなかった動脈病変あるいは動脈瘤は、少なくとも血管造影検査で認められない程度にまで修復されると考えられ、破裂例でも保存治療されたSAMについてはこれまで再破裂例の報告はなかった。保存治療の適応に関して血管造影検査で活動性の出血がなく早期に出血が止まっていること、動脈瘤破裂しても他の辺縁動脈からの血流で支配臓器の虚血を回避できること、動脈瘤の破裂による出血が限られたスペースに起こり血腫が形成されることで自然に止血されることなどが重要であると考えられていた。

本例で今回入院の再出血時には、血管造影検査で血管外漏出を認め、やはり塞栓術が不可能であったため外科紹介となり、SAMの診断で手術を行った。切除標本で腫瘍は二つの仮性動脈瘤・血腫で形成されており、前回と今回の2回の瘤破裂が考えられる。一つの仮性動脈瘤が圧迫壊死により腸管内に穿破して下血を来したものと考えられる。出血量が多く大きな血腫で腸管圧迫壊死を

起こし下血したことが新たに再出血できるスペースを形成したリスクの一つと予想される。

医中誌Webで、「segmental mediolytic arteritis」をキーワードとして1983年から2009年までについて検索したところ128編の報告論文があった。多くが腹腔内出血による腹膜炎・ショック、もしくは腹腔内血腫によるイレウス・腸管虚血による症状であったが、下血を起こしたSAMの症例は本例を含め2例である<sup>13)</sup>。また、同一患者での異時性異所性のSAMの2回の動脈瘤破裂例は左結腸動脈瘤と脾動脈瘤に1例認められた<sup>14)</sup>が、同一血管のSAMの再破裂の報告はみられなかった。

SAMに対し保存治療適応は慎重に考え、活動性出血がなく保存的治療した後は、再出血を念頭におき定期的な画像によるチェックが必要であると考えられる。

## 文 献

- 1) Slavin RE, Gonzalez-Vitale JC : Segmental mediolytic arteritis : a clinical pathologic study. *Lab Invest* **35** : 23—29, 1976
- 2) 内山大治, 小金丸雅道, 安陪等思ほか : 原因にSegmental mediolytic arteriopathyが疑われた腹腔内出血症例に対し塞栓術が有効であった1例. *IVR* **20** : 278—281, 2005
- 3) 安岡利恵, 西野小百合, 荻野史朗ほか : Segmental arterial mediolysisにより大網出血を来した1症例. *日消外会誌* **41** : 46—51, 2008
- 4) 井上雅文, 山下好人, 川添義行ほか : 保存治療しえたSegmental arterial mediolysis (SAM)による腹腔内出血の1例. *日腹部救急医学会誌* **27** : 651—653, 2007
- 5) 山根正修, 三谷英信, 宇高徹総ほか : 腹腔鏡下に切除した未破裂右胃動脈瘤の1例. *日臨外会誌* **61** : 391—394, 2000
- 6) 石崎康代, 福田敏勝, 中原雅浩ほか : 保存的治療が可能であった腹部内臓動脈瘤破裂による腹腔内血腫の2例. *日臨外会誌* **69** : 776—780, 2008
- 7) Sakano T, Morita K, Imaki M et al : Segmental arterial mediolysis studied by reported angiography. *Br J Radiol* **70** : 656—658, 1997
- 8) Stanley JC, Tompson NW : Splenic artery aneurysms. *Arch Surg* **101** : 689—697, 1970
- 9) Stanley JC, Wakefield TW, Graham LM et al : Clinical importance and management of Splanchnic artery aneurysms. *J Vasc Surg* **3** : 836—840, 1986
- 10) 大屋久晴, 永田二郎, 間瀬隆弘ほか : 右胃大網動脈瘤破裂による大網出血・腹腔内出血の1例. *手術* **62** : 1345—1348, 2008

- 11) Gruenwald P : Necrosis in the coronary arteries of new-born infants. *Am Heart J* **38** : 889—897, 1949
- 12) 稲田 潔, 池田庸子, 平川栄一郎ほか : Segmental arterial mediolysis (SAM)—最近の本邦報告例について—, *病理と臨* **21** : 1165—1171, 2003
- 13) 長谷川康, 古田凱亮, 西海孝男ほか : 脳血管障害・消化管穿孔をきたし, その後, 胃十二指腸動脈瘤破裂で死亡した segmental arterial mediolysis (SAM) の1例. *日血管外会誌* **13** : 257, 2004
- 14) 瀬上航平, 渡邊泰治, 佐々木貴浩ほか : 異時性に2回破裂し, いずれも救命しえた segmental arterial mediolysis とと思われる1例. *日外科系連会誌* **33** : 88—92, 2008

### A Case of Intra-Abdominal Hemorrhage and Melena in a Middle Colic Aneurysm Rerupture by Segmental Arterial Mediolytic

Hisaharu Oya, Jiro Nagata, Yuki Morioka,  
Takahiro Mase, Masasi Hashimoto and Ichiro Honda  
Department of Surgery, Ichinomiya Municipal Hospital

We report a case of rerupture of an aneurysm of the middle colic artery caused by segmental arterial mediolysis (SAM), a rare nonatherosclerotic noninflammatory arteriopathy. A 56-year-old man admitted for abdominal pain was found in Abdominal computed tomography (CT) to have an intraabdominal hemorrhage, treated conservatively, and discharged. Three weeks later, he was readmitted for melena and loss of consciousness. Abdominal CT showed that the clearly bordered 95 × 64mm tumor had come in contact with the transverse colon. We also found that contrast medium had extravasated to the tumor. Angiography showed that the left branch of the middle colic artery was bead-shaped and an aneurysm had formed there. We attributed these findings to SAM. Attempted arterial embolization was not successful, so we conducted emergency surgery, finding that the tumor, which was in diameter, 9cm indeed contacted the transverse colon under the splenic flexure. We resected the colon and the tumor, which we concluded was a pseudoaneurysm, whose rupture toward the colonic lumen caused melena.

**Key words** : segmental arterial mediolysis (SAM), middle colic aneurysm, rerupture

[*Jpn J Gastroenterol Surg* **43** : 293—298, 2010]

**Reprint requests** : Hisaharu Oya Department of Surgery, Ichinomiya Municipal Hospital  
2-2-22 Bunkyo, Ichinomiya, 491-8558 JAPAN

**Accepted** : July 22, 2009