症例報告

左下横隔動脈領域の caliber persistent artery からの難治性胃出血の 1 例

細井 敬泰¹⁾ 湯浅 典博¹⁾ 竹内 英司¹⁾ 三宅 秀夫¹⁾
永井 英雅¹⁾ 吉岡裕一郎¹⁾ 奥野 正隆¹⁾ 南 貴之¹⁾
宮田 完志¹⁾ 藤野 雅彦²⁾

¹⁾名古屋第一赤十字病院一般消化器外科

²⁾名古屋第一赤十字病院細胞診分子病理診断部

症例は 29 歳の妊婦で、2014 年 5 月、妊娠 29 週に切迫早産で入院した翌日、吐血したため緊急上部消化管内視鏡検査を施行した。胃底部に噴出性出血を認め、クリップにより止血したが出血を繰り返した。胎児への影響を考慮して入院 8 日目に帝王切開を施行した。CT、血管造影で左下横隔動脈から胃への流入枝に太い血管の増生を、脾動脈および左腎動脈に動脈瘤を認めた。出血が持続したため入院 14 日目に腹腔鏡下胃部分切除術を施行した。切除標本では胃粘膜下層に異常に太い動脈の増生とその破綻を認め、左下横隔動脈領域の caliber persistent artery (CPA) の破綻による出血と診断した。術後の頭部 magnetic resonance angiography で左内頸動脈に動脈瘤を認めた。本症例は多発内臓動脈瘤、脳動脈瘤を併存することから、病因として線維筋性異形成 (fibromuscular dysplasia) が示唆された。

キーワード：caliber persistent artery, 下横隔動脈, 線維筋性異形成

はじめに

Caliber persistent artery (以下、CPA と略記) は異常に太い動脈が固有筋層を貫通後も口径を維持したまま粘膜下層を走行する先天異常であるが、この動脈の破綻により大出血を来することがある¹⁾。今回、多発内臓動脈瘤、脳動脈瘤を併存する妊婦に発症した左下横隔動脈領域の CPA からの難治性胃出血を経験し、腹腔鏡下胃部分切除を行い良好な結果を得たので報告する。

症 例

患者：29 歳、女性

主訴：吐血

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2014 年 5 月、妊娠 29 週に切迫早産で当院産婦人科に入院した。入院翌日に吐血しショック状態となったため緊急上部消化管内視鏡検査を行ったところ、胃底部の露出血管から噴出性出血を認めた。クリッピングに加えて hypertonic saline-epinephrine 局注、トロンビン散布を併用して止血した (Fig. 1)。

入院時身体所見：身長：152 cm, 体重：43 kg, 体温：36.6°C, 血圧：120/71 mmHg, 心拍数：122 回/分。

入院時血液生化学検査所見：WBC $11.1 \times 10^3/\mu\text{l}$, RBC $2.69 \times 10^6/\mu\text{l}$, Hb 8.4 g/dl, Ht 26.1, PLT $201 \times 10^3/\mu\text{l}$,

Fig. 1 (a) Upper gastrointestinal endoscopy showing arterial bleeding at the gastric fundus. (b) The bleeding is controlled by clipping.

Fig. 2 Enhanced abdominal CT showing an early well-enhanced area (arrowhead) in the gastric fundus.

PT 13.4 秒, PT 活性 68%, INR 1.18, APTT 30.9 秒, Fibrinogen 425 mg/dl, FDP 7.2 μ g/dl, TP 5.4 mg/dl, Alb 3.1 mg/dl, Tb 0.8 mg/dl, AST 11 U/l, ALT 8 U/l, BUN 27 mg/dl, Cr 0.41 mg/dl, eGFR 144.7 ml/min/1.73 m² と, 貧血と低蛋白を認めたが血液凝固能は保たれていた。

入院後経過: 胃からの出血は内視鏡的処置により一時的に止血されたが, その後も出血を繰り返したため, 4 日間に計 20 単位の赤血球輸血を要し, 入院 6 日目には Hb 5.9 g/dl となった。妊娠による血行動態の変化が出血を助長している可能性, 不安定な血行動態の胎児への影響を考慮し, 入院 8 日目に帝王切開術を施行した。血小板数は $211 \times 10^3/\mu$ l と保たれていたため, 帝王切開術は安全に行われ, 1,125 g の低出生体重児を無事に出産した。出産後に施行した腹部造影 CT で胃底部胃壁内に造影早期より強くエンハンスされる領域を認め (Fig. 2), さらに 3D-angiography で脾動脈および左腎動脈に囊状, 紡錘状の動脈瘤を認めた (Fig. 3)。腹部血管造影では右腎動脈から分岐する左下横隔動脈からの胃底部への流入枝に太い血管の増生を認めた (Fig. 4a, b)。腹部大動脈からの左下横隔動脈起始部は狭窄しており, カテーテルが挿入できず塞栓術の施行は困難であった。また, 脾動脈幹部に径 15 mm の囊胞状動脈瘤, 左腎動脈遠位部に径 10 mm の 2 個の紡錘状動脈瘤を認めた (Fig. 5)。出産後も胃底部からの出血が持続したため, 入院 14 日目に腹腔鏡下胃部分切除術を行った。胃底部周囲の流入血管を処理した後に, 術中胃内視鏡検査を行って出血部位が切除範囲に含まれること, 胃部分切除後に胃内腔に狭窄を来さないことを確認しつつ, X 線透

Fig. 3 3D-angiography showing a saccular aneurysm in the splenic artery (SPA) (arrow) and spindle shaped aneurysms in the left renal artery (l-RA) (arrowheads). CHA: common hepatic artery, r-RA: right renal artery.

Fig. 4 (a) Right renal angiography showing a small tortuous artery (white arrowhead) perfusing the left inferior phrenic artery (l-IPA). (b) Abdominal angiography showing hyperplastic thick arteries in the gastric fundus (white arrow) from the l-IPA. Black arrowheads: clips used for endoscopic hemostasis.

視を使用して止血に用いた多数のクリップを指標に、自動縫合器を用いて胃底部を全層切除した (Fig. 6a, b).

切除標本肉眼所見：切除された胃底部は 95×55 mm の大きさで、胃粘膜は多結節状に膨隆し、びらんと凝血塊を認めた (Fig. 7).

病理組織学的検査所見：びらん、凝血塊に一致して胃壁は疎な粘膜下層によって肥厚し、そこに径 600 μm ~ 4,600 μm の太い動脈を多数認め、粘膜欠損部でその一つが破綻していた。周囲組織に炎症性変化や線維化を認めなかった (Fig. 8).

術後経過は良好で術後第 6 日目に退院した。術後 4 か月後にスクリーニング目的で施行した頭部 magnetic resonance angiography で左内頸動脈に嚢状の動脈瘤を認めた (Fig. 9)。術後 1 年 9 か月を経過した現在、胃出血、動脈瘤の破裂を示唆する臨床所見を認めていない。帝王切開で出産した子供は当院の小児科で follow-up されているが、成長、発達に異常を認めていない。

Fig. 5 Left renal angiography showing two spindle shaped aneurysms (white arrowheads).

Fig. 6 (a, b) Intraoperative fluoroscopic image showing a gastroscope (E), automatic suturing device (AS) and many clips (arrowheads) used for hemostasis.

Fig. 7 Macroscopic findings of the resected gastric fundus showing multinodular protrusions with erosion and blood coagula.

Fig. 8 Histopathological findings of the resected specimen showing a thick gastric wall, many large aberrant arteries 600 μ m–4,600 μ m in diameter (black arrows), and erosion due to a ruptured artery (white arrowhead) (a: HE, $\times 1$, b: HE, $\times 20$, c, d: Elastica Masson Goldman stain, $\times 20$).

Fig. 9 Head magnetic resonance angiography showing a saccular aneurysm (arrowhead) in the left internal carotid artery.

考 察

CPA は異常に太い動脈が固有筋層を貫通後も口径を維持したまま粘膜下層を走行する先天異常である。その動脈が破綻することにより大出血を来することがあり、Dieulafoy 潰瘍の原因として知られている¹⁾。Dieulafoy 潰瘍は胃体上部に好発し、微小な粘膜欠損に一致して粘膜下層の比較的太い動脈が破綻し、大量

出血を来す疾患である²⁾。近年、他の消化管や気管支、口唇などの領域でも報告がある^{3)~6)}。かつては Dieulafoy 潰瘍の動脈が破綻する原因として動脈瘤や動脈硬化、動静脈奇形などが考えられていたが、現在は先天の血管走行異常である CPA が原因と考えられている^{7)~10)}。Dieulafoy 潰瘍は中年の男性に多いが、乳児から高齢者までさまざまな年齢層で報告されている⁵⁾¹¹⁾¹²⁾。

CPA は病理組織学的に粘膜下層に存在する径 350 μm ~1,000 μm 以上の異常に太い動脈で、この動脈の破綻は動脈が粘膜面を挙上した部分に多く、それを被覆する粘膜の欠損は UL-II までの浅い潰瘍で、周囲の炎症性変化に乏しい¹⁰⁾¹³⁾。CPA のほとんどは左胃動脈領域にあり、出血は胃噴門部および体上部の小彎側に好発する¹⁾。出血の機序として、①異常に拡張した動脈によって直上の胃粘膜が挙上、圧迫されることで菲薄化し、そこに胃液の作用が加わり血管壁が侵食される⁷⁾、②異常動脈によって挙上された胃粘膜に機械的損傷が加わる¹⁴⁾、③潰瘍が偶然に異常動脈を侵食する、④異常動脈が血栓と壊死により破綻する⁹⁾、などが考えられている。

自験例では右腎動脈から分岐する左下横隔動脈領域の CPA が胃出血の原因であった。左下横隔動脈の起始部は腹腔動脈 (20~47%) や大動脈 (16~45%) であることが多く、腎動脈が起始部となることはまれで (0.5~5%)、左胃動脈、肝動脈などから起始することもある¹⁵⁾¹⁶⁾。左下横隔動脈の分枝の一つとして胃噴門枝があるが、胃出血の責任血管となることは少ない¹⁰⁾。我々が検索しえたかぎりでは、消化管出血の原因が CPA の破綻であることを示した報告は自験例を含め 41 例であった (Table 1)^{1)17)~26)} (医学中央雑誌: 1977~2016 年, PubMed: 1950~2016 年, キーワード「消化管出血」, 「gastrointestinal hemorrhage」, 「caliber persistent artery」)。左下横隔動脈領域の報告はなかった。平均年齢は 62 歳で男性 22 例、女性 19 例であった。病変部位は胃上部に多く (胃体上部: 17 例, 胃底部: 8 例, 噴門下: 4 例)、潰瘍の大きさの平均は 6.5 mm, CPA 径の平均は 1,559 μm であった。自験例では下横隔動脈は大動脈からの起始部が狭窄していたため右腎動脈から灌流され、その領域に CPA を認めたことが特徴的であった。

自験例では妊娠によるエストロゲン分泌増加による血管壁弾性線維の障害、循環血液量の増加による血行動態の変化などが CPA の破綻に影響し、さらに出血を助長した可能性がある。内視鏡的止血が困難であったため、胃部分切除によって出血をコントロールした。それに先立ち、妊娠による血行動態の変化が出血を助長している可能性、不安定な血行動態の胎児への影響を考慮し、帝王切開を行った。その後、造影剤を用いた精査が可能となり、造影 CT および血管造影によって左下横隔動脈領域の胃壁内 CPA の存在が示唆された。カテーテル塞栓術も考慮したが、腹部大動脈からの左下横隔動脈起始部が狭窄していたこと、左下横隔動脈に流入する右腎動脈からの分枝は細く蛇行しカテーテル挿入が困難であったため、腹腔鏡下胃部分切除を行った。Dieulafoy 潰瘍の治療は内視鏡的止血術が第一選択で、クリップ法やバンド結紮法などの機械的止血に薬剤局所注入や熱凝固を組み合わせで行われる。止血成功率は 90%以上とされるが、2~20%に再出血を認める。内視鏡的止血困難例や再出血を繰り返す症例には経動脈的塞栓術や手術が選択され、約 5%に手術移行例を認める^{27)~31)}。術式は胃部分切除や胃楔状切除が標準であるが、胃壁縫合術や原因血管の結紮術なども行われる^{28)32)~35)}。胃壁縫合術や血管結紮術は原因血管が残存するため再出血のリスクがあるが、胃部分切除や胃楔状切除が不可能な症例に適応されることが多い¹⁾³³⁾。近年では、自験例と同様、腹腔鏡下手術も行われるようになった^{32)~35)}。

自験例では CPA に加えて多発内臓動脈瘤、脳動脈瘤を認めたことから線維筋性異形成 (fibromuscular dysplasia; 以下, FMD と略記) や分節性動脈中膜融解 (segmental arterial mediolysis; 以下, SAM と略記) などの全身性動脈疾患の存在が示唆される。どちらも筋性動脈に発生する原因不明の非動脈硬化性、非炎症性の変性疾患である^{36)~38)}。FMD は若年から中年女性に多く、発生部位は腎動脈が 60~75%、頭頸部動脈が 25~30%で、26%に複数病変を認め、腎動脈瘤は中・遠位部に好発する³⁹⁾⁴⁰⁾。病理組織学的に線維化や平滑筋の不規則な増生、消失による壁肥厚、菲薄化が特徴で、病変の主座が内、中、外膜のどこにあるかで 1) intimal fibroplasia, 2) medial fibromuscular dysplasia, 3) periarterial fibroplasia の三つに分類され

Table 1 Reported cases of gastrointestinal hemorrhage from caliber persistent artery in the Japanese and English literature

No	Author	Year	Age	Sex	Symptom	Ulcer size (mm)	Location of CPA	Diameter of CPA (μm)	Feeding artery
1	Krasznai ¹⁷⁾	1968	74	F	hematemesis, melena	nd	gastric fundus, aw	1,800×1,000	nd
2	Krasznai ¹⁷⁾	1968	47	F	hematemesis, melena	nd	lower stomach, pw	2,200×800	nd
3	Krasznai ¹⁷⁾	1968	71	F	hematemesis, melena	nd	lower stomach, pw	4,000×3,000	nd
4	Krasznai ¹⁷⁾	1968	68	F	hematemesis, melena	nd	upper stomach, aw	1,200×1,000	nd
5	Krasznai ¹⁷⁾	1968	52	F	hematemesis, melena	nd	gastric fundus, pw	1,000×800	nd
6	Molnár ¹⁸⁾	1982	79	M	vomiting	10	gastric pylorus	2,200×1,200	nd
7	Chen ¹⁹⁾	1985	15	M	melena	nd	ileum	7,000	ileal artery
8	Varga ²⁰⁾	1986	12	F	hematemesis	10	gastric pylorus	nd	nd
9	Mikó ²¹⁾	1988	72	F	nd	3	upper stomach, lc, pw	890	nd
10	Mikó ²¹⁾	1988	68	F	nd	3	upper stomach, lc	680	nd
11	Mikó ²¹⁾	1988	77	M	nd	5	upper stomach, aw	810	nd
12	Mikó ²¹⁾	1988	76	F	nd	4	upper stomach, aw	1,160	nd
13	Mikó ²¹⁾	1988	74	M	nd	12	upper stomach, lc	1,180	nd
14	Mikó ²¹⁾	1988	47	M	nd	4	upper stomach, lc, aw	710	nd
15	Mikó ²¹⁾	1988	28	M	nd	6	middle stomach, pw	600	nd
16	Mikó ²¹⁾	1988	82	F	nd	8	gastric subcardia	770	nd
17	Mikó ²¹⁾	1988	78	F	nd	4	upper stomach, lc, aw	1,280	nd
18	Mikó ²¹⁾	1988	74	M	nd	10	upper stomach, lc, pw	1,390	nd
19	Mikó ²¹⁾	1988	48	M	nd	2	middle stomach, lc, pw	950	nd
20	Mikó ²¹⁾	1988	55	F	nd	2	upper stomach, lc, pw	890	nd
21	Mikó ²¹⁾	1988	89	F	nd	6	upper stomach, lc, pw	980	nd
22	Mikó ²¹⁾	1988	59	F	nd	7	upper stomach, lc, aw	1,050	nd
23	Mikó ²¹⁾	1988	59	F	nd	3	upper stomach, pw	1,360	nd
24	Mikó ²¹⁾	1988	80	F	nd	10	upper stomach, lc, aw	1,310	nd
25	Mikó ²¹⁾	1988	77	M	nd	6	upper stomach, lc, pw	1,260	nd
26	Mikó ²¹⁾	1988	77	M	nd	6	gastric fundus, aw	1,680	nd
27	Mikó ²¹⁾	1988	39	M	nd	2	gastric fundus, aw	2,420	nd
28	Mikó ²¹⁾	1988	58	M	nd	7	upper stomach, pw	670	nd
29	Mikó ²¹⁾	1988	77	F	nd	6	middle stomach, lc, pw	1,170	nd
30	Mikó ²¹⁾	1988	59	M	nd	3	middle stomach, pw	880	nd
31	Mikó ²¹⁾	1988	71	M	nd	12	gastric antrum	790	nd
32	Mikó ²¹⁾	1988	78	F	nd	7	gastric fundus, pw	1,030	nd
33	Eidus ²²⁾	1990	65	F	hematemesis	nd	gastric fundus	nd	left gastric artery
34	Miyagawa ²³⁾	1991	58	M	hematemesis	nd	gastric subcardia, aw	nd	left gastric artery
35	Miyagawa ²³⁾	1991	78	M	hematemesis, melena	13×8	gastric subcardia, pw	nd	left gastric artery
36	Miyagawa ²³⁾	1991	47	F	hematemesis	20×10	gastric subcardia, pw	nd	left gastric artery
37	Mino ²⁴⁾	2004	31	F	melena	nd	jejunum	nd	first and second jejunal arteries
38	Scudiere ²⁵⁾	2006	7	M	hematemesis	7	gastric fundus, gc, pw	nd	nd
39	Gurzu ²⁶⁾	2013	75	M	hematemesis	3×4×3	upper stomach, lc	nd	nd
40	Gurzu ¹⁾	2014	62	M	hematemesis, melena	5	gastric antrum, lc	nd	nd
41	Our case		29	F	hematemesis	3	gastric fundus, gc	600–4,600	left inferior phrenic artery

nd: not described, aw: anterior wall, pw: posterior wall, lc: lesser curvature, gc: greater curvature

る³⁶⁾⁴¹⁾。このうち medial fibromuscular dysplasia type が最も頻度が高く、血管造影で内腔の拡張と狭窄が交互に見られる string and beads sign を呈する。自験例における CPA は FMD に特徴的とされる病理組織学的所見を示さなかったが、年齢、性、動脈瘤の発生部位から臨床的に FMD との関連が示唆される。

SAM は中高年の男性に多く、腹部大動脈分枝に好発し中膜解離により動脈瘤を形成する。病理組織学的に動脈瘤壁中膜の島状存在 (medial island)、外膜は保たれるが内膜の破綻を認めること (medial gap)、瘤内の炎症所見、粥状硬化所見を認めないことが特徴である³⁷⁾。SAM と FMD は病理組織学的に類似した所見を認めることがあり、SAM と FMD を同一患者に認めた例も報告されている⁴²⁾。Lie⁴³⁾は SAM が FMD の一亜型であると提唱し、Slavin ら⁴⁴⁾、稲田ら⁴²⁾は SAM が FMD の前駆病変であり、SAM によって形成された瘤に修復機転が起こり FMD 様に変化すると推定している。FMD では腹部内臓動脈瘤の破裂はまれで、SAM においても自然治癒が見られた症例⁴⁵⁾⁴⁶⁾や臨床的 SAM と診断された症例の 20%に改善あるいは

治癒を認めたという報告もある⁴⁷⁾。自験例においては多発内臓動脈瘤、脳動脈瘤に対して治療を行っていないが、今後も慎重な経過観察が必要である。

利益相反：なし

文献

- 1) Gurzu S, Copotioiu C, Molnar C, Azamfirei L, Jung I. Lethal gastric hemorrhage from a caliber-persistent artery of the antrum—a branch of the right gastric artery. *Hippokratia*. 2014 Apr;18(2):172–6.
- 2) Dieulafoy G. Exulceratio simplex. L'intervention chirurgicale dans les hematemeses foudroyantes consecutives a l'exulceration simple de l'estomac. *Bull de L'Acad de Med*. 1898;39:49–84.
- 3) Gheorghe C. Endoscopic clipping focused on “triclep” for bleeding Dieulafoy’s lesion in the colon. *Rom J Gastroenterol*. 2005 Mar;14(1):79–82.
- 4) Parrot A, Antoine M, Khalil A, Théodore J, Mangiapan G, Bazelly B, et al. Approach to diagnosis and pathological examination in bronchial Dieulafoy disease: a case series. *Respir Res*. 2008 Aug;9:58.
- 5) Senger JL, Kanthan R. The evolution of Dieulafoy’s lesion since 1897: then and now—a journey through the lens of a pediatric lesion with literature review. *Gastroenterol Res Pract*. 2012;2012:432517.
- 6) Costa SA, Ruiz MM, Kaba SP, Florezi GP, Lemos Júnior CA, Witzel AL. Caliber-persistent artery. *Case Rep Dent*. 2015;2015:747428.
- 7) Goldman RL. Submucosal arterial malformation (“aneurysm”) of the stomach with fatal hemorrhage. *Gastroenterology*. 1964 May;46:589–94.
- 8) Fixa B, Komárková O, Dvoráková I. Submucosal arterial malformation of the stomach as a cause of gastrointestinal bleeding. (Three case reports with a review of the literature). *Gastroenterologia*. 1966;105(6):357–65.
- 9) Juler GL, Labitzke HG, Lamb R, Allen R. The pathogenesis of Dieulafoy’s gastric erosion. *Am J Gastroenterol*. 1984 Mar;79(3):195–200.
- 10) 岩淵 三哉, 渡辺 英伸, 石原 法子. [胃の Dieulafoy 潰瘍] 病理からみた胃の Dieulafoy 潰瘍. *胃と腸*. 1987;22(10):1113–24.
- 11) 田中 昌宏, 荒井 博義, 木村 健. [胃の Dieulafoy 潰瘍] 統計を主とした Dieulafoy 潰瘍 93 症例 (本邦報告例) の臨床的分析. *胃と腸*. 1987;22(10):1125–33.
- 12) Stockwell JA, Werner HA, Marsano LS. Dieulafoy’s lesion in an infant: a rare cause of massive gastrointestinal bleeding. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2000 Jul;31(1):68–70.
- 13) 陳 鋼民, 河島 浩二, 林 宏. Exulceratio Simplex (Dieulafoy) の 2 治験例. *外科*. 1984;46(5):543–6.
- 14) Streicher HJ. Massive gastrointestinal bleeding due to solitary simple gastric erosion (of Dieulafoy). *Ger Med Mon*. 1966 Nov;11(11):448–52.
- 15) Ozbulbul NI, Yurdakul M, Tola M, Akdogan G, Olcer T. Can multidetector row CT visualize the right and left inferior phrenic artery in a population without disease of the liver? *Surg Radiol Anat*. 2009 Nov;31(9):681–5.
- 16) Loukas M, Hullett J, Wagner T. Clinical anatomy of the inferior phrenic artery. *Clin Anat*. 2005 Jul;18(5):357–65.
- 17) Krasznai G, Szokoly V. Congenital vascular malformation (“calibre-persistence”) as a pathogenic factor of lethal gastric haemorrhage. *Acta Chir Acad Sci Hung*. 1968;9(2):137–42.
- 18) Molnár P, Mikó T. Multiple arterial caliber persistence resulting in hematomas and fatal rupture of the gastric wall. *Am J Surg Pathol*. 1982 Jan;6(1):83–6.
- 19) Chen KT. Intestinal bleeding from a caliber-persistent submucosal artery in the ileum. *J Clin Gastroenterol*. 1985 Aug;7(4):289–91.
- 20) Varga M, Kiss S, Buris L. A caliber-persistent artery of the gastric wall resulting in fatal haemorrhage. *Z Rechtsmed*. 1986;96(2):141–4.
- 21) Mikó TL, Thomázy VA. The caliber persistent artery of the stomach: a unifying approach to gastric aneurysm, Dieulafoy’s lesion, and submucosal arterial malformation. *Hum Pathol*. 1988 Aug;19(8):914–21.
- 22) Eidus LB, Rasuli P, Manion D, Heringer R. Caliber-persistent artery of the stomach (Dieulafoy’s vascular malformation). *Gastroenterology*. 1990 Nov;99(5):1507–10.
- 23) Miyagawa M, Harada A, Horie A, Haratake J, Hashizume Y, Inoshita S, et al. Dieulafoy’s ulcer associated with the tortuous caliber persistent arteries: report of three cases. *J UOEH*. 1991 Sep;13(3):241–9.
- 24) Mino A, Ogawa Y, Ishikawa T, Uchima Y, Yamazaki M, Nakamura S, et al. Dieulafoy’s vascular malformation of the jejunum: first case report of laparoscopic treatment. *J Gastroenterol*. 2004;39(4):375–8.
- 25) Scudiere JR, Cimbalk D, Jakate S. A 74-year-old man with fatal gastrointestinal bleeding. Ruptured Dieulafoy lesion or caliber-persistent artery. *Arch Pathol Lab Med*. 2006 Feb;130(2):223–4.
- 26) Gurzu S, Copotioiu C, Azamfirei L, Jung I. A caliber persistent artery (Dieulafoy’s lesion) which is associated with an early-stage gastric stump cancer following a distal gastrectomy. *J Clin Diagn Res*. 2013 Aug;7(8):1717–9.
- 27) Sone Y, Kumada T, Toyoda H, Hisanaga Y, Kiriya S, Tanikawa M. Endoscopic management and follow up of Dieulafoy

- lesion in the upper gastrointestinal tract. *Endoscopy*. 2005 May;37(5):449–53.
- 28) Baxter M, Aly EH. Dieulafoy's lesion: current trends in diagnosis and management. *Ann R Coll Surg Engl*. 2010 Oct;92(7):548–54.
 - 29) Ahn DW, Lee SH, Park YS, Shin CM, Hwang JH, Kim JW, et al. Hemostatic efficacy and clinical outcome of endoscopic treatment of Dieulafoy's lesions: comparison of endoscopic hemoclip placement and endoscopic band ligation. *Gastrointest Endosc*. 2012 Jan;75(1):32–8.
 - 30) Jamanca-Poma Y, Velasco-Guardado A, Piñero-Pérez C, Calderón-Begazo R, Umaña-Mejía J, Geijo-Martínez F, et al. Prognostic factors for recurrence of gastrointestinal bleeding due to Dieulafoy's lesion. *World J Gastroenterol*. 2012 Oct;18(40):5734–8.
 - 31) Park SH, Lee DH, Park CH, Jeon J, Lee HJ, Lim SU, et al. Predictors of rebleeding in upper gastrointestinal Dieulafoy lesions. *Clin Endosc*. 2015 Sep;48(5):385–91.
 - 32) Mixer CG 3rd, Sullivan CA. Control of proximal gastric bleeding: combined laparoscopic and endoscopic approach. *J Laparoendosc Surg*. 1992 Apr;2(2):105–9.
 - 33) Draper G, Layani L, McLeish J. Management of Dieulafoy's disease with combined endoscopy and laparoscopic gastric wedge resection. *Aust N Z J Surg*. 1999 Feb;69(2):156–8.
 - 34) Proske JM, Vons C. Transgastric laparoscopic approach for resection of hemorrhagic Dieulafoy's vascular malformation. *Surg Endosc*. 2004 Mar;18(3):554–6.
 - 35) Alva S, Abir F, Tran DD. Laparoscopic gastric wedge resection for Dieulafoy's disease following preoperative endoscopic localization with India ink and endoscopic clips. *JSLs*. 2006 Apr–Jun;10(2):244–6.
 - 36) Lüscher TF, Lie JT, Stanson AW, Houser OW, Hollier LH, Sheps SG. Arterial fibromuscular dysplasia. *Mayo Clin Proc*. 1987 Oct;62(10):931–52.
 - 37) 稲田 潔, 池田 庸子, 前多 松喜, 水島 睦枝, 小島原 将保, 下川 邦泰. 胃動脈瘤及び中結腸動脈瘤の病理 segmental arterial mediolysis. *病理と臨床*. 1999;17(8):835–42.
 - 38) Slovut DP, Olin JW. Fibromuscular dysplasia. *N Engl J Med*. 2004 Apr;350(18):1862–71.
 - 39) Safian RD, Textor SC. Renal-artery stenosis. *N Engl J Med*. 2001 Feb;344(6):431–42.
 - 40) Olin JW. Recognizing and managing fibromuscular dysplasia. *Cleve Clin J Med*. 2007 Apr;74(4):273–4, 277–82.
 - 41) Harrison EG Jr, McCormack LJ. Pathologic classification of renal arterial disease in renovascular hypertension. *Mayo Clin Proc*. 1971 Mar;46(3):161–7.
 - 42) 稲田 潔, 池田 庸子. Segmental arterial mediolysis (SAM) 52 例の検討 2, 3 の問題点について. *病理と臨床*. 2008;26(2):185–94.
 - 43) Lie JT. Segmental mediolytic arteritis. Not an arteritis but a variant of arterial fibromuscular dysplasia. *Arch Pathol Lab Med*. 1992 Mar;116(3):238–41.
 - 44) Slavin RE, Saeki K, Bhagavan B, Maas AE. Segmental arterial mediolysis: a precursor to fibromuscular dysplasia? *Mod Pathol*. 1995 Apr;8(3):287–94.
 - 45) 宮地 正彦, 蜂須賀 喜多男, 山口 晃弘. 中結腸動脈瘤破裂の 2 例 報告例の集計と文献的考察. *臨床外科*. 1985;40(12):1601–7.
 - 46) Sakano T, Morita K, Imaki M, Ueno H. Segmental arterial mediolysis studied by repeated angiography. *Br J Radiol*. 1997 Jun;70(834):656–8.
 - 47) Kalva SP, Somarouthu B, Jaff MR, Wicky S. Segmental arterial mediolysis: clinical and imaging features at presentation and during follow-up. *J Vasc Interv Radiol*. 2011 Oct;22(10):1380–7.

CASE REPORT

Refractory Gastric Hemorrhage from Caliber Persistent Arteries of the Left Inferior Phrenic Artery

Takahiro Hosoi¹⁾, Norihiro Yuasa¹⁾, Eiji Takeuchi¹⁾, Hideo Miyake¹⁾,
Hidemasa Nagai¹⁾, Yuichiro Yoshioka¹⁾, Masataka Okuno¹⁾, Takayuki Minami¹⁾,
Kanji Miyata¹⁾ and Masahiko Fujino²⁾

¹⁾Department of Surgery, Japanese Red Cross Nagoya Daiichi Hospital

²⁾Department of Cytology and Molecular Pathology, Japanese Red Cross Nagoya Daiichi Hospital

A 29-year-old pregnant woman at 29 weeks of gestation was admitted to the Department of Obstetrics for imminent abortion in May, 2014. Because she had hematemesis on the day after admission, emergency upper gastrointestinal endoscopy was performed, which revealed arterial bleeding at the gastric fundus. The bleeding was controlled by clipping, however, massive transfusion was necessary for recurrent hemorrhage. Considering the effect on the fetus, a cesarean section was performed on the 8th day of admission. Contrast enhanced CT showed an early well-enhanced area in the gastric fundus and aneurysms in the splenic artery and left renal artery. Angiography showed hyperplastic thick arteries in the gastric fundus from the left inferior phrenic artery. Right renal angiography showed a small tortured artery perfusing the left inferior phrenic artery. Because of repeated gastric bleeding, laparoscopic partial resection of the gastric fundus was performed on the 14th day of admission. Histopathological findings of the resected specimen revealed many large aberrant arteries 600 μ m–4,600 μ m in diameter in the gastric submucosa, and erosion due to a ruptured artery. We diagnosed this case as gastric hemorrhage from caliber persistent arteries (CPA) from the left inferior phrenic artery. Postoperative head magnetic resonance angiography showed a saccular aneurysm in the left internal carotid artery. Considering multiple aneurysms in the abdomen and brain, fibromuscular dysplasia may be associated with CPA.

Key Words: caliber persistent artery, inferior phrenic artery, fibromuscular dysplasia

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2017;50(2):112-121]

Reprint requests: Takahiro Hosoi Department of Surgery, Japanese Red cross Nagoya Daiichi Hospital
3-35 Michishita-cho, Nakamura-ku, Nagoya, 453-8511 JAPAN

Accepted: September 21, 2016