脾頭部動静脈奇形による十二指腸潰瘍からの出血に対し 緊急幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を施行した 1 例

大阪警察病院外科, 同 病理*

西 宏之 仲原 正明 荻野 信夫
城戸 哲夫 中尾 量保 辻本 正彦*

消化管出血により出血性ショックに陥った脾頭部動静脈奇形 (AVM) に対し, 緊急幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を行い救命しえた 1 例を経験した。患者は 57 歳の男性。繰り返す十二指腸潰瘍からの出血と腹痛の精査目的のため施行した腹部血管造影検査にて脾頭部 AVM と診断された。他院にて AVM への塞栓術を 2 回施行するも症状軽快せず, 当院に転院。手術待機中に大量吐血からショック状態に陥り緊急手術となった。胃十二指腸動脈の結紮にても出血を制御できず, 救命のため幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を施行した。病理組織検査にて脾周囲から十二指腸粘膜下層にかけての大小不同の動静脈および潰瘍底に露出する静脈が認められた。術後は多臓器不全, DIC に陥ったが, 回復し, 第 76 病日に退院した。術後 19 か月の現在, 再発を認めない。脾 AVM 報告 66 例中の脾頭十二指腸切除施行例は 12 例であるが, 緊急手術による救命例は自験例のみであった。

はじめに

脾動静脈奇形 (arteriovenous malformation: 以下, AVM) はまれな疾患¹⁾だが, 消化管出血や腹腔内出血をきたすことがあり, 適切かつ迅速な治療を要する^{2,3)}。今回, われわれは十二指腸潰瘍への穿通により出血性ショックに陥った脾頭部の AVM に対し, 緊急手術にて幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を行い救命しえた極めてまれな 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者: 57 歳, 男性

主訴: 吐下血, 腹痛

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 50 歳時に十二指腸球部潰瘍穿孔にて大網充填術施行。

現病歴: 平成 10 年 4 月より十二指腸下行脚潰瘍からの出血と腹痛を繰り返していた。他院にて腹部血管造影検査を施行し, 脾頭部 AVM と診断された。4 月 16 日と 5 月 17 日に後上脾十二指腸動脈, 横行脾動脈から AVM への栄養動脈に対し SAP microsphere による塞栓術を施行し, AVM の縮小と一時的な止血が得られたが腹痛が軽快せず, 加療目的で当院転院となった。

入院時現症: 上腹部に自発痛, 圧痛を認めた。

入院時検査所見: 軽度の炎症所見以外は異常を認めなかった。腫瘍マーカーも正常範囲内であった。

腹部血管造影検査: 他院で施行された腹腔動脈および上腸間膜動脈造影において, 脾頭部に拡張, 蛇行した著明な血管増生を認め, 動脈相早期より拡張した流出静脈と門脈が描出された (Fig. 1)。

腹部 CT 検査: 脾頭部に限局し, 造影剤に濃染する不整な腫瘍像を認めた (Fig. 2)。

腹部超音波検査: 脾頭部に不整な腫瘍像と門脈への流出静脈を認めた。

上部消化管内視鏡検査: 十二指腸下行脚の乳頭部より肛門側に深い潰瘍を認めた。

保存的治療にて全身状態は安定し手術待機中のところ, 6 月 17 日, 突然の大量吐血を来した。ショック, 無呼吸に陥り, 直ちに挿管し, 緊急手術を施行した。

手術所見: 開腹すると, 消化管内に大量の血液を認めたが, 腹腔内への出血は認められなかった。脾頭部から鉤部は線維性に肥厚し癒着が強く AVM の存在による変化と思われた。胃十二指腸動脈を中枢側および末梢側で 4 か所結紮するも, 胃十二指腸動脈の拍動は減弱せず, 出血を制御できなかった。止血し救命するには脾頭部の切除が必要と判断し, 幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を施行した。手術時間は 12 時間 55 分で,

< 2000 年 5 月 23 日受理 > 別刷請求先: 西 宏之
〒543 0035 大阪市天王寺区北山町 10 31 大阪警察
病院外科

Fig. 1 Celiac (a) and superior mesenteric (b) angiography showed marked hypervascularity in the pancreas head at early arterial phase. Portal vein was demonstrated at the early phase.

Fig. 2 Abdominal computed tomography (CT) showed a strongly enhanced mass in the pancreas head at early phase.

出血量は消化管内血液を含み8,030mlであった。

摘出切除標本：脾頭部は線維性に肥厚し，十二指腸下行脚の乳頭部のすぐ肛門側に潰瘍病変を認めた (Fig. 3) 。

病理組織所見：大小不同の動静脈が十二指腸粘膜下層から脾周囲に密に見られ，潰瘍底に径3mm 大の静脈が開口露出していた (Fig. 4) 。

術後経過：腹腔内出血を合併し，多臓器不全，DICに陥ったが，集中治療により回復した．その後も大腸穿孔，腹腔内膿瘍を併発したが，回復し第76病日に退院した．術後19か月の現在再発を認めず，良好に経過している．

Fig. 3 a : Macroscopic findings of the resected specimen showed sclerosis around the pancreatic head. b : A duodenal ulcer was detected beside the anal side of the duodenal papilla

考 察

脾 AVM は，1968年に Halpern ら¹⁾により初めて報告された脾臓内での動脈系と静脈系の異常短絡吻合による腫瘍形成性の血流異常疾患である．成因は，原始

Fig. 4 a : Microscopic view of the resected specimen revealed the abundant abnormal vessels.
b : One of the vein of the AVM fenestrated to a duodenal ulcer.

血管網の遺残による先天性と脾の炎症、腫瘍、外傷に伴う後天性に分類される。先天奇形では Rendu-Osler-Weber 病に併存することが知られている¹⁾。本症は極

めてまれな疾患で、本邦および欧米で文献的に我々が検索しえた範囲では、過去65例が報告されている¹⁾⁻¹³⁾。Table 1は、脾 AVM 報告例の性別、部位、症状、併存疾患、治療についてまとめたものである。性別は、男性47例、女性15例と男性に多く、年齢は7か月～73歳と幅広いが40歳以上が55例(85%)と中高年に多い傾向がある。部位は頭部31例、体尾部23例、脾全体10例となっている。

症状は、吐血、下血などの消化管出血が28例、腹痛が20例と多く、その他には腹腔内出血³⁾や胆管出血⁴⁾、胆管狭窄による黄疸を来した例も認められる⁵⁾。無症候性のもも8例に認められ、これらは肝精査時に偶然発見されたものが多い⁶⁾。AVM による消化管出血の原因としては、①合併する門脈圧亢進症に伴う食道胃静脈瘤出血、②消化管への AVM 自体の破綻、③ AVM による難治性十二指腸潰瘍からの出血、④AVM から脾管内への出血、⑤AVM から胆管内への出血に分類される⁷⁾。自験例は難治性十二指腸潰瘍による出血が原因と考えられた。

基礎疾患としては Rendu-Osler-Weber 病が8例に認められる。食道静脈瘤15例、肝硬変14例と門脈圧亢進症に關係する疾患の併存が多い。自験例は合併疾患や門脈圧亢進、肝硬変を認めず、先天性によるものと考えられる。十二指腸潰瘍の併存も8例と多くみられ、原因としては、動静脈奇形の成長に伴う局所的虚血による粘膜障害が挙げられる⁸⁾。組織学的には AVM は大小不同で不規則な血管より構成されており、構成血

Fig. 5 Treatment of AVM of the pancreatic head

Table 1 Clinical characteristics of 65 patients with AVM of the pancreas

1) Sex		5) Complication	
Male	47	Varices	15
Female	15	Liver cirrhosis	14
Unknown	3	Duodenal ulcer	8
2) Localization		Rendo-Osler-Weber	
Head	31	syndrome	8
Body-tail	23	Hepatoma	7
Entire pancreas	10	6) Treatment	
Unknown	1	Pancreatic resection	22
3) Symptom		Transarterial embolization	9
G.I.bleeding	28	Operation to portal	
Abdominal pain	20	hypertention	5
Bile duct stenosis	2	Arterial ligation	3
Intraabdominal bleeding	1	No treatment	18
Bile duct bleeding	1	Others	8
No Symptom	8		
Others	5		

管により arterial type, venous type, intermediate type の3つに分類されている⁹⁾。自験例は動脈類似の血管と静脈類似の血管が混在しており, intermediate type と考えられた。

脾 AVM は症状なく偶然発見された場合は, 多くは経過観察されるが¹⁰⁾, 腹痛, 消化管出血といった症状がある場合には治療の対象となる。AVM に対する治療は, 大きく観血的療法と非観血的療法に分けられる。観血的療法の方法は AVM の局在部位や合併症により異なる。根治のために, 脾頭十二指腸切除術や脾体尾部切除+脾摘術といった AVM の全摘を目的とした手術が22例に施行されており, 血管結紮術などの姑息的手術も施行されている (Table 1)。また, 対症療法として門脈圧亢進症に対する手術が施行される場合もある。一方, 非観血的療法としては経動脈のカテーテル塞栓術があり, 9例に施行されている。部位は, 頭部4例, 体尾部2例, 全体2例, 不明1例である。塞栓術のみで良好な結果が得られた症例は5例で, 3例は続いて手術療法を施行している。また, 一過性に効果が得られたものの再開通が生じ, 塞栓効果が不十分であった症例もみられ¹¹⁾, 塞栓術は根治的処置ではなく予防的処置の意味合いが強いと思われる。自験例においても, 塞栓術を2回施行したが満足のいく成果が得られず, 外科的処置が必要となった。

脾頭部の AVM 32例の治療内容は, 併存疾患や症状の有無により影響されている (Fig. 5)。肝硬変などの

併存疾患が存在する場合には, 塞栓術や経過観察などの保存的療法が多く選択される。一方で, 併存疾患が存在せず, 症状がある場合は積極的な外科治療が施されている。根治性を目指した脾頭十二指腸切除は13例に施行され, 自験例を除いた12例は待機手術にて施行されている。いずれも良好に経過しており, 現在において脾頭十二指腸切除は安全な術式と言える。自験例のようにショック状態に陥った後に緊急幽門輪温存脾頭部十二指腸切除術を行った論文報告は, 検索した範囲では認められなかったが, 嚴重な術後管理により良好な結果を得た。

今回われわれは, 脾頭部 AVM による出血性ショックに陥った症例に対して緊急幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を施行し, 救命した。本症に対しては保存的療法が無効な場合には, 積極的な外科的治療が望ましいと考えられた。

文 献

- 1) Halpern M, Turer AF, Citron BP et al: Hereditary hemorrhagic teleangiectasia. An angiographic study of abdominal visceral angiodysplasia associated with gastrointestinal hemorrhage. Radiology 90: 1143-1149, 1968
- 2) 杉森志穂, 中島祥介, 金廣裕道ほか: 脾頭部動静脈奇形の1例切除例. 日消外会誌 28: 1090-1094, 1995
- 3) 堀井淳史, 山本博史, 木村 昇ほか: 腹腔内出血を来した脾頭部の動静脈奇形の1例. 日臨外会誌

- 誌 53 : 1956 1961, 1992
- 4) Ishikawa M, Tanaka M, Ogawa Y et al : Arteriovenous malformation at pancreatobiliary region causing hemobilia after cholecystectomy. *Gastroenterology* 105 : 1553 1556, 1993
 - 5) Katoh H, Tanabe T : Congenital arteriovenous malformation of the pancreas with jaundice and a duodenal ulcer : Report of a case. *Surg Today* 23 : 1108 1112, 1993
 - 6) 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脾動静脈奇形の 1 例 . *臨消内科* 12 : 139 142, 1997
 - 7) 山本 博, 松枝和宏, 脇谷勇夫ほか : 十二指腸出血を来した脾動静脈奇形の 1 例 . *Gastroenterol Endosc* 39 : 226 232, 1997
 - 8) Hines JR, Stryker SJ, Neiman HL et al : Intraoperative angiography in intestinal angiodysplasia. *Surg Gynecol Obstet* 152 : 453 460, 1981
 - 9) 布野健一, 梅沢卓也, 石沢共樹ほか : 脾頭動静脈奇形の 3 症例 . *昭和医会誌* 51 : 236 241, 1991
 - 10) Kurosaki M, Hattori K, Minato Y et al : Asymptomatic arteriovenous malformation of the pancreas. Demonstration by doppler ultrasonography and magnetic resonance imaging. *Dig Dis Sci* 38 : 1342 1346, 1993
 - 11) 森田 稔, 斉藤博哉, 篠原正裕ほか : 脾動静脈奇形の臨床・画像的検討 . *胆と脾* 9 : 605 613, 1988
 - 12) 鈴木修司, 羽生富士夫, 田中精一ほか : 脾頭部動静脈奇形の 1 例 . *日消外会誌* 31 : 2006 2010, 1998
 - 13) Takiguchi N, Ichiki N, Ishige H et al : Pancreatic arteriovenous malformation involving adjacent duodenum in a patient with gastrointestinal bleeding. *Am J Gastroenterol* 90 : 1143 1149, 1995

A Case of Arteriovenous Malformation of the Pancreatic Head
Successful Treatment by Emergency Pylorus
Preserving Pancreaticoduodenectomy

Hiroyuki Nishi, Masaaki Nakahara, Nobuo Ogino, Tetsuo Kido,
Kazuyasu Nakao and Masahiko Tsujimoto*
Departments of Surgery and Pathology, Osaka Police Hospital

A case of arteriovenous malformation (AVM) of the pancreatic head, successfully treated by emergency pylorus preserving pancreaticoduodenectomy, is reported. A 57 year-old man was referred with abdominal pain and gastrointestinal bleeding due to a duodenal ulcer. Abdominal ultrasonography and CT scan showed a tumor in the pancreatic head. Celiac and superior mesenteric angiography showed a typical racemose vascular network with early identification of the portal venous system. A diagnosis of AVM was made. Though transarterial embolization was performed twice, gastrointestinal bleeding due to the duodenal ulcer could not be stopped and he went into shock. Emergency pylorus preserving pancreaticoduodenectomy was performed. Histological examination revealed abundant abnormal vessels including arteries and veins. The postoperative clinical course was severe, but the patient recovered and was discharged on the 76th postoperative day. There has been no recurrence of symptoms or the imaging diagnostic signs.

Key words : pancreatic arteriovenous malformation, pylorus preserving pancreaticoduodenectomy

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 1681 1685, 2000]

Reprint requests : Hiroyuki Nishi Osaka Police Hospital

10 31 Kitayama-chou, Tennouji-ku, Osaka, 543 - 0035 JAPAN