術前部位診断しえた小腸毛細血管腫の1例

兵庫県立柏原病院外科, 神戸大学医学部第2病理*

大島富太郎 嶋田 安秀 楠 信也
岩谷 慶照 宮崎 直之 北澤 莊平*

小腸透視によって部位診断しえた極めてまれな小腸毛細血管腫の1例を経験した。症例は70歳の女性。全身倦怠感を主訴に近医を受診し、強度の貧血の精査目的で当院を紹介された。注腸造影, 上部消化管内視鏡検査, 腹部CTおよび消化管出血シンチグラフィでは出血を疑わせる所見は認められなかった。大腸内視鏡検査にて, 盲腸および回腸末端部に血液の貯留を認めたため, ロングチューブ挿入後造影検査を行った。その結果小腸に径約1.5cmの類円形の陰影欠損を認め, 出血源がこの腫瘍であると判断して開腹手術を施行した。術中所見ではトライツ靱帯より約3m, 回腸末端より約2.5mの小腸中央部に, 漿膜と腸間膜移行部に発赤を伴った柔らかい腫瘍を触知し, これを含めて小腸部分切除術を施行した。切除標本では大きさ15×15×8mm, 弾性軟, 亜有茎の腫瘍であった。病理組織学的所見は毛細血管腫と診断され, 悪性所見は認められなかった。術後経過は良好で21病日に退院した。

はじめに

全消化管出血のうち小腸出血の頻度は2~5%と少なく, なかでも出血をきたす小腸原発腫瘍のうち, 血管腫は極めてまれであり, 術前診断は非常に困難であるとされている。術前診断が可能であったのは, 本邦では自験例を含めて13例にすぎない。

今回, われわれは消化管出血をきたし, 小腸造影によって術前部位診断しえた小腸毛細血管腫の1例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 70歳, 女性

主訴: 全身倦怠感

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成7年頃より検診にて貧血を指摘されていた。平成12年1月頃より全身倦怠感があり, 近医を受診し貧血を指摘され, 鉄剤投与を受けるも改善しないため, 原因検索が目的で当院を紹介された。外来にて逆行性腸透視および上部消化管内視鏡検査を施行したが, 出血源は同定されなかった。腹部CTにて脾腫を認めたため入院精査となった。

入院時現症: 体格・栄養中等度, 血圧110/55 脈拍120/分と頻脈で, 眼瞼結膜に貧血を認めた。表在リン

Table 1 Laboratory data on admission

[Hematology]		[Blood chemistry]	
WBC	3,700 /mm ³	TP	5.9 g/dl
RBC	221 × 10 ⁴ /mm ³	Alb	3.7 g/dl
Hb	5.8 g/dl	GOT	16 IU/l
Ht	19.4 %	GPT	10 IU/l
Plt	23.0 × 10 ⁴ /mm ³	LDH	303 IU/l
[Tumor marker]		[Blood chemistry]	
CEA	2.4 ng/ml	ALP	92 IU/l
CA19-9	10 < U/ml	γ-GTP	6 IU/l
[Stool]		CPK	42 IU/l
Occult blood (+)		BUN	10 mg/dl
		Cr	0.5 mg/dl
		CRP	0 mg/dl
		Na	142 mEq/l
		K	4.2 mEq/l
		Cl	112 mEq/l

パ節は触知せず, 胸腹部に異常は認めなかった。

一般検査所見: 一般検血にて強度の貧血を認め, 免疫学的便潜血反応は陽性であった。生化学的検査では血清蛋白の低下以外に異常なく, CEA および CA19-9 などの腫瘍マーカーは正常であった。なお骨髓穿刺検査は明らかな異形性はみとめなかつた (Table 1)。胸腹部単純 X 線検査に異常を認めなかった。

消化管出血シンチ所見: 貧血の増強時に^{99m}Tc 赤血球標識シンチグラフィ (以下, シンチグラフィ) を用いて, 4 時間後まで追撮したが, 出血を疑わせる所見は

< 2002 年 9 月 25 日受理 > 別刷請求先: 大島富太郎
〒669 3395 兵庫県氷上郡柏原町柏原 5208 1 兵庫県
県立柏原病院外科

Fig. 1 Endoscopic picture revealed a pool of blood in the cecum through the terminal ileum, with bleeding arising from the small intestine.

Fig. 2 Intestiniography through an ileus tube showed round shape of shadow defect of approximately 1.5 cm in diameter (arrow)

認めなかった。

大腸内視鏡検査所見：逆行性腸透視検査にて異常は認められなかったが、盲腸および回腸末端部内腔に淡血性だが血液の貯留が認められた (Fig. 1)。胃内視鏡検査を再施行したが、明らかな出血源は認めず、小腸からの出血を疑った。

小腸造影検査所見：イレウスチューブ挿入後に施行した小腸造影によって、小腸のほぼ中央部に径約 1.5 cm 大、類円形の陰影欠損が認められた (Fig. 2)。

出血源がこの小腸腫瘍であると判断して、全身麻酔下に開腹手術を施行した。

手術所見：肝転移、腹膜播種および腹水は認めなかった。トライツ靱帯から約 3m、回腸末端部より約 2.5m の小腸中央部の漿膜と腸間移行部に発赤を伴った直径約 1.5cm 大の腫瘤を触知した。また同部付近の小腸内に暗赤色の血液の貯留が透見された (Fig. 3)。全腸管を検索したが、ほかに病変は認めず、この部位が出血源と考えて、腫瘤を含め小腸部分切除術を施行した。

摘出標本：腫瘍は径約 1.5cm、亜有茎性、軟らかい病変であった (Fig. 4)。

病理組織学的所見：ルーベ像では、病変の主体は肥厚した粘膜内であったが、一部は粘膜下層から固有筋層に至る形で腫瘍は存在していた (Fig. 5a)。強拡大では、病変は毛細血管レベルの血管増生より成り、毛細血管腫の像を呈していた。核分裂像などは無く、悪性

Fig. 3 Intraoperative photograph showed a red soft mass located in the serosa attached to the mesentery (arrow)

所見は認められなかった (Fig. 5b)。

入院後臨床経過：入院後、適宜輸血を施行したが、貧血は改善せず経過していた。術後は貧血を認めず 21 病日に退院した。

考 察

小腸出血は全消化管出血例の 2 ~ 5% の頻度で少ない¹⁾²⁾。また小腸血管腫は小腸良性腫瘍の約 10% を占めるにすぎない³⁾⁴⁾。一般に小腸血管腫は、Kaijser ら⁵⁾

Fig. 4 Resected specimen showed a soft 15 × 15 × 8 mm tumor (arrow)

の病理形態学的分類が用いられており、I型：多発性静脈拡張症，II型：海綿状血管腫，III型：単純性毛細血管腫およびIV型：血管腫症である．このうち海綿状血管腫が多いとされるが，I型：II型：III型：IV型の割合は欧米で4：4：1：1であり⁶⁾，本邦では約1：8：5：3である．われわれが検索しえた範囲で小腸血管腫は91例が報告されているが，まれな疾患であり，なかでも自験例の毛細血管腫は極めてまれな症例といえる．

発症年齢は平均30歳台と若年者に多く，男女比は3：1と報告されている^{7)~10)}．

症状は消化管出血が76%で最も多く，次いで腹痛であり⁴⁾¹⁾，腸閉塞，腸重積も報告されている．下血が認められ，上部および下部消化管からの出血が否定された場合，当疾患からの小腸出血を念頭に置く必要がある．

発生部位はトライツ靱帯より1m以内か，回腸末端部より1m以内に多いとされているが¹¹⁾，自験例は小腸の中央部付近であった．

小腸血管腫の術前診断は困難であり，術前診断が可能であった症例は，検索しえた範囲ではTable 2に示すごとく，自験例を含めて13例に過ぎない^{7)9)~12)}．

自験例も含め，術前に診断された小腸血管腫13例中7例が小腸造影で存在診断されていることを考えれば，是非必要な検査法である．その他，腹部血管造影やシンチグラフィで術前診断されたという報告もある．

自験例は持続的な消化管出血による強い貧血が認められたため，出血源の確認のために消化管出血シンチ

Fig. 5 (a) Low power view of the resected tumor showed as a subpedicled lesion localized mainly in the mucosal layer (H.E. staining loupe)
(b) Histopathologically, tumor was composed of small capillary vessels without mitotic figures, and diagnosed as capillary hemangioma (H.E. × 100)

グラフィを施行した．腹部血管造影が0.5ml/min以上の出血を要する¹³⁾のに対して，シンチグラフィは非侵襲的であり，0.05ml/min以上の出血があれば描出可能とされ，10倍鋭敏とされている¹⁴⁾．しかし出血源は確認できなかった．小腸造影は小腸の解剖学的特徴のために，病変の描出率は低いとされているが，大腸内視鏡検査にて回盲部に出血が確認できたことから，ロングチューブすなわちイレウスチューブを留置して施行したことが小さな病変を明瞭に検出するのに極めて有効であった．

治療の原則はポリペクトミーを含めた外科的切除術であるが，術前診断にて出血源が不明な場合には，積

Table 2 Reported cases of hemangioma of the small intestine which was able to be made of a preoperative local diagnosis

No	author	year	age	sex	position (from Treitz lig)	size (cm)	method of diagnosis
1	Fujita	1985	22	f	2cm	15	intesttinography angiography
2	Murata	1985	4	f	*190cm	2.3 × 1.5	scintigraphy
3	Narita	1987	20	m	25cm	1.0 × 0.8	intesttinography
4	Mikami	1987	52	m	*40cm	2.5 × 2.5 1.2 × 1.0 0.8 × 0.8	intesttinography scintigraphy angiography
5	Ohoke	1989	17	m	*140cm	1.0 × 0.8	intesttinography
6	Tukamoto	1989	61	m	jejunum	1.5 × 0.9	angiography
7	Kubota	1991	80	f	*30cm	5.0 × 4.5	scintigraphy angiography
8	Watanabe	1991	79	f	*30cm	1.5 × 1.5	angiography
9	Bando	1992	44	m	120cm	0.9 × 0.9	angiography
10	Narita	1993	35	m	60cm	1.1 × 1.1	intesttinography
11	Miyagawa	1995	53	m	* 1cm	0.5 × 0.5	colonoscopy
12	Nonaka	2000	63	f	*170cm	3.5	intesttinography
13	Our case	2002	70	f	300cm *250cm	1.5 × 1.5	intesttinography

* from ileum end

極的な試験開腹が重要であり，術中内視鏡検査が病変部位と血管腫の同定に有効である⁸⁾。

本論文の要旨は，第135回神戸外科集談会(2000年6月，神戸)において発表した。

文 献

- 1) 五十嵐正弘，中 英男，外山久太郎ほか：小腸出血性病変の検討．北里医 11：220-229, 1981
- 2) Briley CA, Jackson DC, Johnsrude IS et al : Acute gastrointestinal hemorrhage of small bowel origin. Radiology 136 : 317-319, 1980
- 3) 八尾恒良，日吉雄一，田中啓二ほか：最近10年間(1970～1979)の本邦報告例の集計からみた空・回腸腫瘍．胃と腸 16：1049-1056, 1981
- 4) Willson JM, Melvin DB, Gray G et al : Benign small bowel tumor. Ann Surg 181 : 247-250, 1975
- 5) Kaijser R : Über hamangiome des tractus gastrointestinalis. Arch Klin Chir 187 : 351-388, 1936
- 6) Hansen PS : Hemangioma of the small intestine. Am J Clin Pathol 18 : 14-42, 1948
- 7) 宮川秀一，石原 慎，堀口明彦ほか：消化管出血を来し術前部位診断ができた小腸血管腫の1例．胃

と腸 30：1681-1684, 1995

- 8) 丸山克之，高橋 均，前田重成ほか：術中内視鏡検査が出血部位同定に有用であった小腸毛細血管性血管腫の1例．Gastroenterol Endosc 39：239-243, 1997
- 9) 伴登宏行，酒徳光明，荒川龍夫ほか：腹部血管造影で診断し得た小腸血管腫の1例．日消病会誌 89：1528-1531, 1992
- 10) 成田晃一，森田章夫，望月 衛ほか：小腸血管腫の2例．日臨外医会誌 55：1804-1808, 1994
- 11) 成田達彦，梶川真樹，安藤邦彦ほか：大量下血をきたした空腸血管腫の1例．臨外 42：1249-1253, 1987
- 12) 野中道泰，富川盛雅，楠本哲也ほか：貧血で発見された小腸血管腫の1例．日臨外医会誌 61：1223-1227, 2000
- 13) Nusbaum M, Baum S : Radiographic demonstration for unknown sites of gastrointestinal bleeding. Surg Forum 14 : 374-375, 1963
- 14) 嶋田 裕，武田克彦，片山哲夫ほか：99mTc in vivo 標識赤血球による消化管出血の検出について．日消外会誌 17：1748-1757, 1984

A Case of Capillary Hemangioma of the Small Intestine
Preoperatively Diagnosed for the Localization

Tomitarou Ohshima, Yasuhide Shimada, Nobuya Kusunoki, Yoshiteru Iwatani,
Naoyuki Miyazaki and Souhei Kitazawa*

Department of Surgery, Hyogo Prefectural Kaibara Hospital

*Second Department of Pathology, Kobe University School of Medicine

We report a very rare case of capillary hemangioma of the small intestine. A 70-year-old woman admitted for severe anemia was found at intestinography to have bleeding through the ileus tube, even though no focal lesion was seen in examinations such as upper gastrointestinal endoscopy, barium enema, abdominal computed tomography, and ^{99m}Tc -RBC scintigraphy. Total colonoscopy showed a huge blood pool in the cecum through the terminal ileum, with bleeding arising from the small intestine. In intestinography through the ileus tube, we found a round shadow defect about 1.5cm in diameter in the middle of the small intestine. Since the lesion was considered the focus of bleeding, we conducted open laparotomy. A red soft mass was located in the serosa attached to the mesentery. We partially resected the small intestine, including the mass. The resected specimen showed an elastic soft 15 × 15 × 8mm tumor. Histological examination showed nonmalignant capillary hemangioma of the small intestine. The postoperative course was uneventful and the patient was discharged on postoperative day 21.

Key words : capillary hemangioma, small intestine

[Jpn J Gastroenterol Surg 35 : 1821 - 1825, 2002]

Reprint requests : Tomitarou Ohshima Department of Surgery, Hyogo Prefectural kaibara Hospital
5201 1 Kaibara, Kaibara-cho, Hikami-gun, Hyogo, 669 3395 JAPAN