症例報告

脾動脈の硬化性変化により主膵管に穿通をきたした hemosuccus pancreaticus の 1 例

富山県立中央病院外科

根塚 秀昭 薮下 和久 北條 莊三
井口 雅史 藤田 秀人 山本 精一
加治 正英 前田 基一 小西 孝司

主膵管を経て消化管に出血する病態は hemosuccus pancreaticus と呼ばれ、原因は膵仮性嚢胞内への脾動脈瘤の穿破が最多とされる。今回、我々は膵嚢胞性病変や動脈瘤を認めず、動脈硬化性変化に基づく微小な破綻によって主膵管に出血した極めてまれな症例を経験したので報告する。症例は 79 歳の男性で、平成 8 年より度重なる吐下血をきたし精査受けるも原因は不明であった。平成 13 年 11 月、当院内科を紹介受診、上部消化管内視鏡にて十二指腸主乳頭からの血液流出を認め hemosuccus pancreaticus と診断された。血管造影検査にて出血部位が特定できず、症状が増悪するため膵全摘術を施行。病理学的に脾動脈の硬化性変化に基づく主膵管への微小な穿破が出血の原因と診断された。出血源を特定できない消化管出血には本症を疑う必要があると思われた。また、膵機能を考慮した治療法に関し今後も検討が必要と思われた。

はじめに

主膵管を経て消化管に出血する病態は hemosuccus pancreaticus (以下、HP) と呼ばれ¹⁾、比較的まれであるが大量出血をきたすため、临床上重要な疾患である。本症の発生機序は、慢性膵炎あるいは急性膵炎に随伴した膵仮性嚢胞内に、脾動脈などの仮性動脈瘤が穿破し出血することが多いとされている²⁾。今回、我々は膵の嚢胞性病変および脾動脈の仮性動脈瘤を随伴せず、脾動脈の硬化性変化から主膵管に微小な穿通が生じ HP を呈した極めてまれな症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：79 歳、男性

主訴：腹痛、吐下血

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 8 年より度重なる吐下血をきたし、近医を受診し精査受けるも出血源は不明であった。平成 13 年 11 月、吐下血にて当院内科を紹介受診、上部消化管内視鏡にて十二指腸主乳頭から血液の流出を認め HP と診断され、入院となった。

入院時現症：身長 152cm、体重 40kg、血圧 90/60mmHg、脈拍 106/分。眼瞼結膜に貧血を認めた。腹部は平坦で軟。腫瘍を触知せず。上腹部に自発痛を訴えるが、圧痛を認めなかった。

入院時検査成績：RBC $1.56 \times 10^6/\mu\text{l}$ 、Hb 4.6g/dl の著明な貧血を認めた。血清アミラーゼは 406 IU/l であった。

上部消化管内視鏡検査：十二指腸主乳頭開口部より血液の流出を認めた (Fig. 1)。

腹部 CT：主膵管は著明に拡張し、膵管内に鑄型状の比較的高吸収を呈する貯留物 (血液と思われる) を認めた (Fig. 2)。膵嚢胞性病変や、膵周

< 2004 年 6 月 30 日受理 > 別刷請求先：根塚 秀昭
〒930 8550 富山市西長江 2 2 78 富山県立中央病院外科

Fig. 1 Endoscope demonstrated a fresh bleeding from Vaters papillae.

Fig. 2 Abdominal CT scan showed the dilated main pancreatic duct containing with blood.

困の血管の動脈瘤を疑う所見を認めなかった。

腹部血管造影検査：腹腔動脈領域に動脈瘤や造影剤の血管外への明らかな漏出像を認めなかった (Fig. 3)。下膵十二指腸動脈領域からの選択的造影検査により、膵頭部にわずかな造影剤の血管外流出を疑う所見が認められ、同部位に TAE が施行された (Fig. 4)。しかし、この後も間欠的な出血が続いたため 3 回の血管造影検査を行ったが、いずれも明らかな出血部位を特定出来なかった。

逆行性膵管造影検査：主膵管の著明な拡張を認めるものの、不整な壁硬化像や陰影欠損像、pooling、嚢胞性病変を認めなかった (Fig. 5)。

治療経過：輸血、輸液を主体とした対症治療を

Fig. 3 Celiac angiography did not demonstrate the extravasation nor the aneurysms along the pancreas.

行うも症状の改善はみられなかった。また、下膵十二指腸動脈への TAE 施行後も出血が続き、その後の 3 回の血管造影にても出血部位が特定できず、平成 14 年 4 月より消化管出血によるショック状態を反復した。保存的治療による止血処置は困難と考えられたため手術目的に外科転科のうえ、待機的に手術を行った。

手術所見：上腹部正中切開にて開腹し腹腔内を検索するも、膵臓には腫瘍性病変や嚢胞性病変は認められず、また脾動脈領域に明らかな動脈瘤も認めなかった。術前血管造影検査にて膵頭部に出血部位が存在する可能性が疑われていたため全胃温存膵頭十二指腸切除術 (PPPD) を施行すべく門脈左縁で脾を切離すると、拡張した主膵管より凝血塊が噴出した。膵管内の血液を吸引後に膵管鏡を挿入観察するも、遠位側膵管内に新たな血液の流出は認められなかった。しかし、摘出標本を用いた下膵十二指腸動脈よりの術中血管造影にて、明らかな造影剤の漏出像 (出血の再現) が認められず (Fig. 6)、残存脾からの出血の可能性も否定できないため、術式を脾全摘術に変更した。

切除標本：主膵管は著明に拡張し、膵組織は全体的に硬度を増した慢性膵炎の所見を認めた。肉

Fig. 4 Selective angiography from the inferior pancreaticoduodenal artery demonstrated the extravasation to the main pancreatic duct.

眼的には出血を来した原因病巣を確認できなかった。

病理組織学的所見：膵組織は全体的に萎縮し，小葉間には線維化が認められ，慢性膵炎と診断された．脾動脈に動脈瘤は認められなかったが，切離断端部より6cmの部分で屈曲し，著しい粥状硬化を伴い，一部で動脈壁の構造が破壊されすぐ近傍を走行する主膵管に顕微鏡的レベルの大きさで穿破していた．この微小な血管破綻部より膵管内に出血しHPの病態を呈したものと考えられた (Fig. 7)．

術後経過：術前より出血性ショック状態を呈しており，術後，貧血に対して大量の輸血を施行，人工呼吸器を装着しての集中治療を施していた．

Fig. 5 ERCP shows the dilated main pancreatic duct, without revealing an irregular stenosis and the cystic lesions.

徐々にショック状態より離脱しつつあると考えられたが，第2病日に突然心筋梗塞を併発し，急性心不全にて死亡した．長期に及ぶ貧血状態，術前の出血性ショック状態に加え，長時間に及ぶ膵全摘術が，79歳の高齢者に対しては過大な侵襲であった可能性が推察された．

考 察

HPは，我々が渉猟しえた限りでは本邦において60数例の報告例がある．本症の原因としては，膵炎に随伴した膵仮性嚢胞内への出血，真性動脈瘤の膵実質内での破裂，慢性膵炎に併発した膵石による血管障害などが挙げられている¹²⁾．膵仮性嚢胞は，慢性あるいは急性膵炎の10～20%に随伴し，さらに嚢胞内出血はその6～10%に併発するといわれている²⁾．この嚢胞が膵管と交通する場合にHPを呈するとされ，本病態の最多の発生原因と考えられている³⁾．

今回，我々の経験した症例では膵の嚢胞性病変や動脈瘤は認められず，動脈硬化性変化に基づく脾動脈の破綻による出血と考えられ，極めてまれな症例と思われた．しかし，本症例では軽度の慢

Fig. 6 Angiography with the resected material pancreatic head demonstrated no extravasation.

性膵炎像は呈するものの、脾動脈の破綻を引き起こすごとの強い炎症像は認められず、脾動脈の破綻および主膵管との穿通の直接的な原因は不明である。

HP の診断は内視鏡にて Vater 乳頭からの出血を確認することであるが、実際には必ずしも容易ではなく、報告例において乳頭部からの出血が確認することができた症例は約 30% 程度にすぎない。本症例も経過中頻回に内視鏡検査が施行されているが、Vater 乳頭からの出血が確認されたのは 1 回のみであった。HP における出血は間欠的であることが多いと考えられ、したがって本疾患を疑う場合は頻回に内視鏡を行う必要があると思われる。ERCP や腹部 CT は膵嚢胞性病変の描出に、血管造影検査は動脈瘤の部位や出血源の同定に有用であるとされるが⁴⁾、本症例では膵の嚢胞性病変や動脈瘤を合併せず、結果的に出血部位の同定や原因の診断には至らなかった。

HP の治療は、血管造影検査にて出血の原因血管が同定されている場合はまず TAE の施行が有効である。しかしながら、出血のコントロールが

Fig. 7 Splenic artery which wall was thick with arteriosclerosing ruptured into the main pancreatic duct (H.E. $\times 10$)

不良な症例および出血部位が特定できない症例においては嚢胞性病変を含めた膵切除や動脈瘤の切除などの外科的治療が必要となる^{4,5)}。本症の予後は、Stabile ら⁶⁾によれば 1951 年以降の 30 年間における報告例 131 例中、その 37% が死亡したと報告されている。また、Frey⁷⁾や Gadacz ら⁸⁾は 25 ~ 40% の死亡率を報告しており、適切な止血処置が奏功しない場合は予後不良の転帰をとる症例が少なくないことを示している。

HP は良性疾患であり、罹患平均年齢が 51 歳と比較的若年であることも合わせ、可能な限り血管造影にて出血部位を同定した上で、まずは TAE を試みるべきと思われる。TAE の不能例に対しては手術が必要であるが、できるだけ膵機能を温存した術式を選択すべきと思われる。

膵機能を温存した術式としては、頭側膵切除や尾側膵切除、あるいは膵部分切除が残存膵の機能が期待できる術式であるが、本症例のごとく出血部位の同定に難渋した場合には、膵の切除部位に

熟考を要すると思われた。すなわち、今回我々は出血部位の術中診断法として脾頭部切除後、内視鏡（脾管鏡）を用いて残存脾に出血がないことを確認したものの、出血は間欠的であったと考えられ、結果的には確証に乏しい診断法であったと思われた。また、脾頭部の摘出標本を用いた血管造影検査にて出血の再現を認めず、切除脾からの出血の可能性が低いことと、残存脾からの再出血の可能性が示唆されたため脾全摘術を施行せざるをえなかった。他の報告例に関しても、血管造影検査や腹部CT以外に出血部位を同定する方法は示されておらず、本症例のごとく出血部位が同定できないHP症例に関して、脾機能の温存を考慮しつつ切除部位を決定することは困難であると思われた。しかしながら、術後のQOLの観点からは非常に重要な問題であり、近年臨床応用が進められている脾島分離移植などを含めて、今後も慎重に考察すべき課題であると考えられた。

文 献

- 1) Sandblom P : Gastrointestinal hemorrhage through the pancreatic duct. *Ann Surg* 171 : 61-66, 1970
- 2) Cahow CE, Gusberg RJ, Gottlieb LJ : Gastrointestinal hemorrhage from pseudoaneurysms in pancreatic pseudocysts. *Am J Surg* 145 : 534-541, 1983
- 3) 坂東隆文, 八巻 隆, 磯山 徹ほか : 脾仮性嚢胞内に出血した左胃大網動脈仮性動脈瘤の1例。胆と脾 13 : 329-334, 1992
- 4) 桑田陽一郎, 廣田省三, 長谷川義紀ほか : 動脈塞栓術により治療した hemosuccus pancreaticus をきたした脾動脈仮性動脈瘤の1例。臨放線 38 : 1475-1476, 1993
- 5) 柳 泉, 古賀昭次, 麻生 公ほか : 脾仮性嚢胞よりの出血に対してTAEが有効であった1例。消外 18 : 1605-1609, 1995
- 6) Stabile BE, Wilson SE, Debas HT : Reduced mortality from bleeding pseudocysts and pseudoaneurysm caused by pancreatitis. *Arch Surg* 118 : 45-51, 1983
- 7) Frey CF : Pancreatic pseudocyst : Operative strategy. *Ann Surg* 188 : 652-662, 1978
- 8) Gadacz TR, Trunkey D, Kieffer RF : Visceral vessel erosion associated with pancreatitis. *Arch Surg* 113 : 1438-1440, 1978

A Case of Chronic Pancreatitis with Hemosuccus Pancreaticus Caused by a Microrupture of the Splenic Artery with Arteriosclerosing into the Main Pancreatic Duct

Hideaki Nezuka, Kazuhisa Yabushita, Shouzou Houjou, Masashi Inokuchi, Hideto Fujita,
Seiichi Yamamoto, Masahide Kaji, Kiichi Maeda and Kohji Konishi
Department of Surgery, Toyama Prefectural Central Hospital

Hemosuccus pancreaticus-blood entering the gastrointestinal tract through the pancreatic duct is rare, and most commonly caused by a pseudoaneurysm of the splenic artery due to acute or chronic pancreatic inflammation. We report hemosuccus pancreaticus caused by a microrupture of the splenic artery with arteriosclerosis into the main pancreatic duct without aneurysms or pancreatic cystic lesions. A 79-year-old man suffering from recurrent hematemesis and melena from July 1996 consulted several hospitals but the cause of gastrointestinal bleeding was not found. In November 2001, endoscopy showed fresh bleeding from the Vaters papillae, and he was diagnosed as hemosuccus pancreaticus. Since we did not detect the hemorrhage locally in angiography near the splenic artery, he did not improve in conservative treatment, so we conducted total pancreatectomy. Histopathologically, the cause of bleeding was a microrupture of the splenic artery with arteriosclerosis into the main pancreatic duct. Hemosuccus pancreaticus is rare, but it is important to treat gastrointestinal bleeding whose origin is not immediately known.

Key words : hemosuccus pancreaticus, chronic pancreatitis, gastrointestinal bleeding

[Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 1883-1887, 2004]

Reprint requests : Hideaki Nezuka Department of Surgery, Toyama Prefectural Central Hospital
2-2-78 Nishinagae, Toyama, 930-8550 JAPAN

Accepted : June 30, 2004