症 例

腹腔内に出血を来した脾頭部の動静脈奇形の1例

第二岡本病院外科

堀井 淳 史 山本 博 史 本村 昇

足立 省 三 北浦 一 弘

同 消化器内科

久津見 弘 小山 邦彦 八城 博子 本井 重博

京都府立医科大学第2外科

佐藤 伸 一 山岸 久 一 岡 隆 宏

今回われわれは特発性の後腹膜腔、腹腔内出血に対して、術前に血管造影検査を行い脾頭部の動静脈奇形を診断した53歳男性の1治験例について報告する。

胸内苦悶、眩暈を主訴としショック状態で当院に転送され、腹部所見や超音波、CT検査より後腹膜腔、腹腔内出血を疑い腹部血管造影検査を行ったところ、脾頭部に血管形成異常を認め、緊急で開腹止血術を行った。脾頭部前面の大きな血腫の為、病態の診断は術中所見からは困難で術前の血管造影検査が診断及び治療上有用であった。

時間的制約のあるショック状態の患者においても可能な限り術前の血管造影検査が必要と考える。

索引用語：腹部血管形成異常、動静脈奇形、後腹膜血腫

結 言

消化器系の動静脈奇形は1960年に Margulis が報告して以来、近年の血管造影検査技術の発達と共に報告されてきているが、脾頭部の動静脈奇形は本邦報告例では自験例を含めて4例にすぎず、また von Recklinghausen 病に合併した腸間膜の動静脈奇形の腹腔内出血例が1例報告されているのみである。

今回われわれは、血管造影において脾頭部腹側の動静脈奇形が後腹膜腔に出血し、引き続き腹腔内出血を来した症例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：53歳、男性。

主訴：胸部苦悶、眩暈、冷汗。

既往歴、家族歴：外傷歴を含め特記すべきこと無し。

現病歴：入院日の正午頃に、胸部苦悶を自覚し、それに引き続き眩暈、冷汗を認めた。このため1次救急病院に収容されたが、体温35.8度、血圧70/48mmHg、脈拍120/minの状態であったため原因不明の非外傷性

のショック状態ということで当院に転送されてきた。

来院時現症：意識不清明、体温34.6度、血圧60/48mmHg、脈拍84/min、呼吸数24/min、体表面には創傷無し、顔面蒼白、腹部はやや膨隆。季肋部から右側腹部に軽度の筋性防御、Blumberg 徴候等の腹膜刺激症状を軽度認めた。腸雑音は聴取不可。直腸指診で異常所見認めず。四肢には冷感及びチアノーゼを認めた。

来院時検査所見：WBC 22,470/mm³、RBC 431万/mm³、Hb 14.2g/dl、Ht 42.0%、Plt 25.9万/mm³、肝機能、腎機能、血性、尿中アミラーゼや血液凝固能は正常範囲内、血液ガス分析は40%インスピロマスク下でPH 7.258、PCO₂ 44.2mmHg、PO₂ 74.5mmHg、BE-7.2mEq/l、HCO₃ 19.7mEq/lとアシドーシスを認めた。心電図では心筋虚血の変化は認めず。

来院時画像診断検査

腹部単純 X-P 写真：右腸腰筋陰影が消失していた。

腹部超音波検査：右腎の辺縁が不明瞭であり、腫瘍様の陰影を臍右側に認めた。ダグラス窩、右横隔膜下、脾臓周囲に明かな anechoic area は描出出来ていない(図1a)。

図1 a. 入院時腹部超音波検査, b~d. 入院時腹部 CT 検査.

腹部 CT 検査：右腎，脾頭部，十二指腸周囲の anterior perirenal space に比較的 X 線高吸収領域を認めた。また一部腹腔内にも高吸収部位を認めた（図 1b, c, d）。

以上の所見及び腹部所見よりショックの原因が消化管ではなく後腹膜腔に起因する病態を疑い緊急血管造影検査を施行した（図 2）。

上腸間膜動脈造影：腹腔動脈と上腸間膜動脈との間には Ventral root の遺残と思われる Arc of Bühler が存在している（図 2a），右結腸動脈より右頭側へ異常小血管が存在し腎門部の高さで不規則な網状構造を形成している（図 2b），脾頭部のアーケード動脈の拡張と蛇行，胃十二指腸動脈より分枝する小血管からも右側腹部で不規則な網状構造を形成しており，動脈相中期ですでに還流静脈が描出されてきている（図 2c）。静脈相では還流静脈の流出先は右側骨盤腔に及んでおりステレオ撮影から読影すると還流静脈は右結腸動脈より背側，回結腸動脈より腹側に位置している事が診断された（図 2d）。

腹腔動脈造影：腹腔動脈造影からも網状構造，還流静脈が造影されている（図 2e）。二度の造影後，右側腹

部での造影剤の血管外貯留を認めた（図 2f）。

血管造影検査終了直前より，腹部全体がさらに膨隆してきて循環動態を維持することが困難となったため，血管造影検査の所見より腹部内臓血管形成異常，脾頭部腹側の動静脈奇形，ここからの後腹膜腔内，腹腔内出血と診断し緊急開腹止血術を行った。

手術所見：上中腹部正中切開にて開腹した。腹腔内にはカウント量だけで約 9,000ml の血液の貯留を認め，横行結腸右側の大網を切離し網嚢内に至ると脾頭部前面を中心に後腹膜血腫が存在しており，臓器の同定や病体の把握は困難な状態であった。しかし術前の血管造影検査の所見を基に，胃十二指腸動脈を露出することより異常血管を確認，次に右結腸動脈よりの異常動脈，還流静脈を同様に露出，同定しこれらを各々結紮した。後腹膜血腫よりの血液の漏出を認めたため腹腔内及び後腹膜にドレナージを行い手術を施行した。

術後経過：術後管理は大量出血，大量輸血の術後管理を必要とし困難を極め，MOF の状態や厚生省 DIC 診断基準の 8 点以上の状態になったが，術後 26 回の人工透析処置等を行い，また右横隔膜下に形成した膿瘍

図2 a～d. 術前上腸管膜動脈造影検査, e, f. 腹腔動脈造影検査.

に対してはエコーガイド下に穿刺ドレナージ処置を行い軽快した。消化管の動静脈奇形の多くは多発病変で

あることが報告されていることや、また頭蓋内の動静脈奇形が臨床的に大きな問題であるため術後3ヵ月目

図3 1. 術後上腸管動脈造影検査, 2, 3. 術後頭部血管動脈造影検査

に血管造影検査を施行したが、他の部位の動静脈奇形、形成異常を認めておらず術後105日目に軽快退院した(図3)。

考 察

最近血管造影法の普及と発達に伴い消化器系の動静脈奇形が散見されるようになってきた。消化管動静脈奇形は1960年に Margulis¹⁾が、消化管出血例で術中血管造影を実施し明らかにしたのが最初の報告である。Moor²⁾らは1976年に消化管動静脈奇形を発症、年齢、存在部位、手術所見等を基に3型に分類している。I型は孤立性で右半結腸に多く発症年齢は55歳以上であり、II型は主として小腸に発生し、発症年齢は50歳以下で先天的要因が考えられており、III型は Rendou Osler-Weber 病に伴うものとしている。また動静脈奇形は先天性と後天性とにも分類されており、先天性のものは、原始血管網が何らかの原因により遺残したものと考えられており、後天性のものは、腫瘍、炎症や外傷による二次的なものである。今回の症例は術前の

血管造影検査でも認めている Arc of Buhler の存在から判断して先天性の原因が強く疑える。

本邦報告例では胃以下の腸管に発生しており、小腸、右側結腸に好発しており60歳未満では小腸に、60歳以上では右側結腸に多発する傾向も報告されている³⁾。実質臓器における動静脈奇形は極めて稀でありその報告例も少なく、本邦では脾7例、肝1例が報告されているのみである⁴⁾。脾頭部の動静脈奇形の報告は自験例を含めても脾7例の内4例^{5)~7)}でありそれらの多くが慢性消化管出血である。今回われわれが経験した様な後腹膜出血を来し、それが腹腔内に穿破した症例は、von Recklinghausen 病に合併した51歳の男性の下腸間膜動脈領域の動静脈奇形が腹腔内出血した症例として本邦で僅か1例報告されているのみである⁸⁾。

非外傷性後腹膜血腫に対しては表1に示す疾患等を念頭に置き診断、治療を行うわけであるが、外傷性のものではあればすでに解剖学的位置から Blaisdell と Trunkey の分類⁹⁾があり3型に分類している(図4)。

図4 後腹膜血腫の解剖学的分類

- 1: central-medial retroperitoneal hematomas
 2: flank retroperitoneal hematomas
 3: pelvic retroperitoneal hematomas

さらに彼らは受傷機転や術中の血腫の増大傾向の有無より治療法が選択されなければならないとしており、穿通性の Type I と Type III は重篤な損傷を合併することが多いため、手術療法を行い、Type II には選択的に保存療法をとるのが最近の趨勢になっていると報告している。外傷性後腹膜血腫に対する治療方針をそのまま非外傷性のものに適用することは出来ないと考えられるが、本症例の場合の様に特発性に Type I の後腹膜血腫を形成し腹腔内に穿破したことより経動脈的塞栓術 (TAE) も十分に考えられるが、開腹止血術が必要であったと考えている¹⁰⁾。

ショック状態の患者においては、時間の制約のため超音波検査、CT 検査は行っても血管造影検査まで行えることは少ないかとも思われる。今回われわれが経験した症例は臍頭部の腹側前面ではあるが、後腹膜血腫のため術中所見では病体の把握は困難であり、異常血管を露出、同定することは術前の血管造影検査所見無しでは非常に困難で、十分に止血を行えずそのため救命し得なかったことが予想される。

表1 特発性後腹膜血腫の原因

- 1) 血管病変
 - 血管炎 (特に結節性動脈周囲炎)
 - 大動脈瘤
 - 腹腔動脈分枝の動脈瘤
 - 上下腸間膜動脈分枝の動脈瘤
 - 腎動脈瘤
 - 腎動静脈瘻
- 2) 腎疾患
 - 腫瘍
 - 実質性病変 (糸球体腎炎、腎盂腎炎等)
 - 移植腎
 - 特発性破裂
- 3) 副腎疾患
 - 腫瘍
 - 動脈血栓症
 - 嚢胞破裂
- 4) 脾疾患
 - 腫瘍
 - 出血性脾炎
- 5) 婦人科疾患
 - 子宮外妊娠
- 6) 血液疾患
 - 凝固障害 (血友病等)
 - 抗凝固療法
- 7) 原因不明

今後、後腹膜血腫の原因疾患として血管形成異常を念頭に置き、可能な限り術前に血管造影検査を行った方が有用であり、さらに多発病変も報告されていることより全身状態の許す限り、解剖学的に可能性のある多くの血管の造影をするのが良いのではと考えている。

結 語

1) 臍頭部の動静脈奇形が後腹膜に出血しそれが腹腔内に穿破した症例を経験したので報告した。

2) 今回術前に血管造影を行ったことにより十分に止血が行えたと考える。今後、時間的制約のあるような後腹膜出血、腹腔内出血の場合でも術前に血管造影検査を行うことが有用であると考えている。

文 献

- 1) Margulis AR, Heinbecker P, Bernard HR: Operative mesenteric arteriography in the search for the site of bleeding in unexplained gastrointestinal hemorrhage. *Surgery* 48: 534—539, 1960
- 2) Moor JD, Thompson NW, Appelman HD: Arteriovenous malformations of the gastro-

- intestinal tract. Arch Surg 111: 381—389, 1976
- 3) 柳 秀憲, 楠 正人, 山村武平他: 消化管血管形成異常, 日臨外会誌 45: 581—589, 1990
 - 4) 松田真佐男, 伊藤正光, 石博秀勝他: 腸管動静脈奇形の3例と本邦報告58例の検討, 日臨外医会誌 12: 2263—2370, 1988
 - 5) 北野 均, 石田陽一, 木谷 恒他: 脾動静脈奇形の1例, 日脾病研究会プロシーディングス 12: 262, 1982
 - 6) 橋本光代, 山田直行, 福地創太郎他: 十二指腸傍乳頭部潰瘍と総胆管十二指腸瘻を合併した脾頭部動静脈奇形の1例, 日消病会誌 80: 1496, 1983
 - 7) 野崎美和子, 中島哲夫, 鈴木文直他: 頻回の下血を主訴とした脾頭部動静脈奇形1症例の画像診断, 埼玉医会誌 18: 567, 1983
 - 8) 禰宜田政隆, 末永裕之, 鈴木祐一他: von Recklinghausen 病合併腸間膜動脈領域血管病変の2例, 日臨外医会誌 51: 2717—2722, 1990
 - 9) Costa M, Robbs JV: Management of retroperitoneal hematoma following penetrating trauma. Br J Surg 72: 662—664, 1985
 - 10) 石原 諭, 岡田芳明: 診断が困難であった非外傷性後腹膜血腫の1例, 救急医 15: 330—331, 1991

INTRAABDOMINAL RUPTURE OF VISCERAL ARTERIOVENOUS MALFORMATION —REPORT OF A CASE—

Atsushi HORII, Hiroshi YAMAMOTO, Noboru MOTOMURA, Shouzou ADACHI,
Kazuhiro KITAURA, Hiroshi KUTSUMI*, Kunihiko KOYAMA*,
Hiroko YASHIRO* and Shigehiro MOTOI*

Department of Surgery and Medicine*, Daini Okamoto Hospital
Shin-ichi SATOH, Hisakazu YAMAGISHI and Takahiro OKA
Second Department of Surgery, Kyoto Prefectural University of Medicine

A case of the visceral arteriovenous malformation (AVM) which ruptured idiopathically into the retroperitoneal cavity is reported.

A 53-year-old man was complaining of chest discomfort and dizziness urgently transported to the hospital under the shock condition. From physical signs, ultrasound examination and CT of the abdominal region, an intraabdominal and anterior pararenal hematoma was suspected. Emergency angiography of the visceral artery showed AVM around the pancreas head region. An emergency laparotomy was performed to control hemorrhage. The large retroperitoneal hematoma had concealed the details of the AVM where preoperative angiography was very useful. The patient was successfully operated on and was discharged from the hospital on the 105 day after the operation. Based on this experience with AVM, we emphasize the importance of preoperative angiography, even if the patient has a limited time due to shock and so on.