症 例

術前診断し得た回腸動静脈奇形の1例

京都第一赤十字病院外科, 同 救急部*, 同 病理診断部**

徳川 奉 樹 武藤 文 隆 栗岡 英 明

大内 孝 雄 大塚 弘 友* 細川 洋 平**

症例は47歳女性。宗教上の理由で輸血を拒否。96年7月23日貧血、下血を主訴とし当院受診。著明な貧血のため緊急入院。入院時上部および下部消化管内視鏡検査にて異常なく鉄剤の投与にて貧血の改善あり軽快退院となるも96年10月より tarry stool を認め HT 値23%であり緊急入院となる。Meckel 憩室、小腸腫瘍を疑い腹部 Angio 施行し SMA 回腸枝に拡張蛇行血管認め96年12月9日手術施行。術中内視鏡を行い terminal ileum から50cmの位置から100cmにわたり計6箇所小結節隆起を認め粘膜面に血管が一部露出しておりこの部位を動静脈奇形と判断しこれを含む回腸を切除した。術後経過良好で97年1月9日退院となる。消化管出血の原因の一つとして腸管の動静脈奇形は知られているが発生頻度が低く報告例は少ない。血管造影、出血シンチなどの検査が有効であり、術中の肉眼による病変部の確認が出来る症例は少なく術中内視鏡等による病変部の確認を行い切除範囲を決定する必要があると考えられた。

索引用語：回腸動静脈奇形、消化管出血

はじめに

消化管動静脈奇形(AVM)は、1956年に初めて Rutter らによって報告された稀な疾患であるが急性または慢性的消化管出血の原因の一つであり重要である。今回われわれは腹部血管造影検査にて術前診断し得た回腸動静脈奇形の1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：47歳、女性。

主訴：貧血、眩暈。

既往歴・家族歴：特記事項無し。

現病歴：1995年6月23日頃からの眩暈を労作時に自覚するようになった為近医受診し貧血 (HT 19.6%, HB 6.3g/dl) および便潜血反応陽性を指摘された。眩暈の訴え強く当院救急外来受診精査目的にて胃腸科入院となる。

入院時現症：眼瞼結膜に貧血を認める。胸腹部所見に異常を認めない。直腸指診では腫瘍や黒色便を認めず。血圧135/80mmHg, 脈拍は84/分であった。

入院時検査成績：血液検査末梢血で、赤血球数269×

10⁴/mm³, HB 6.8g/dl, HT 22.0%と著明な貧血が認められた。

生化学的検査では、血清鉄35μg/dlと低値を認める以外異常は認められなかった。また免疫学的便潜血反応は陰性であった (表1)。

臨床経過：入院4日前より黒色便を認めておりこのため入院当日に上部消化管内視鏡施行したが出血源を認めず婦人科的検索でも異常を認めなかった。宗教上の理由により輸血、アルブミン製剤などの血液製剤の使用を強く拒否され、また入院後は黒色便を認めず vital sign も安定していたため、鉄剤の投与を行い貧血の改善を待って諸検査を進めることとした。Meckel シンチ、小腸造影、注腸造影検査では特に出血源を確認できず、貧血も改善したため一旦退院となった。退院後約2カ月後から1日1回の黒色便を認めるようになり、再入院となった。今回入院時は小腸出血を強く疑い諸検査を考慮したが輸血拒否の意志は変わらず貧血は高度であったが、現在止血している臨床症状であったためIVH管理とした。この間図1に示す通りHT値の変動を認めた (図1)。

消化管出血シンチ：回盲部付近に少量の出血と思われる移行所見を認めた (図2)。

1997年1月23日受付 1997年5月13日採用

表 1 入院時検査成績

一般検査		生化学検査		Fe	35 μ g/dl
免疫便潜血反応 (-)		TP	6.8 g/dl	TIBC	329 μ g/dl
便虫卵 (-)		GOT	15 IU/l	Ferritin	53 μ g/ml
尿検査		GPT	13 IU/l	IgG	830 mg/dl
潜血 (-) 蛋白 (-) 糖 (-)		LDH	389 IU/l	IgA	175 mg/dl
血液検査		T-Bil	0.4 mg/dl	IgM	239 mg/dl
WBC	5,500 /mm ³	CPK	80 IU/l	IgE	156 mg/dl
RBC	269 $\times 10^4$ /mm ³	AMY	157 IU/l	電解質	
HT	22.0 %	BUN	12 mg/dl	異常なし	
HB	6.8 g/dl	CRE	0.7 mg/dl	胸部部X線検査	
PLT	2.86 $\times 10^4$ /mm ³	血糖	110 mg/dl	異常なし	
血液凝固系検査		CRP	0.2 mg/dl	心電図	
異常なし				異常なし

図 1 臨床経過

図 2 消化管出血シンチ：回盲部付近に少量の出血

腹部選択的血管造影所見：上腸間膜動脈造影検査にて回腸枝 1 本が軽度拡張し末梢で拡張蛇行した動脈を認め動脈相後期に一部 portal vein の描出を認めた。同部位は24時間後の出血シンチの集積部位に一致しており回腸動静脈奇形と診断し開腹手術を施行した（図 3）。

術中所見：下腹部正中切開にて開腹し腹腔内を検索したところ回腸末端部から約50cm の位置から小腸漿膜面の血管増生、怒張、発赤を認めこの所見は回腸末端部から約150cm の位置まで計 6 箇所で見られた。

術中内視鏡検査：上記部位に一致して粘膜下腫瘍様のわずかに発赤した小結節状隆起を認めた。その他に

明らかな病変は認めず血管造影検査所見に一致するので同部位が出血に関する責任病巣であると判断し同部位の回腸を病変を含め約100cm 切除し空腸端々吻合を施行した（図 4）。

切除標本：小腸漿膜面で毛細血管が不規則に増加、拡張し中動脈の不規則な蛇行を認める。筋層から粘膜下層に太い血管が認められこの部位では血管壁全体が漿膜側より粘膜側に向かって持ち上がっていた（図 5）。

病理標本 1：漿膜面から固有筋層、粘膜下層にかけ

図3 腹部血管造影検査：SMA 造影で回腸枝の拡張および動脈相後期の portal vein の早期描出

図4 術中内視鏡：粘膜下腫瘍様の発赤した小結節隆起を認める。

て中等大動脈性血管が貫通しており血管は内腔の狭窄，壁肥厚，壁の硝子化を呈し粘膜下層で毛細血管，細血管が不規則に拡張していた（図6）。

病理標本2：粘膜下層で毛細血管，細血管が不規則に拡張増した所見を認め，粘膜は萎縮していた（図7）。

図5 切除標本：小腸漿膜面の拡張した毛細血管の増生・蛇行を認める。

図6 病理標本1：粘膜下層の動脈の拡張および壁の硝子化（HE 染色，×200）。

図7 病理標本2：粘膜の萎縮および粘膜下の細血管の増生（HE 染色，×360）。

術後経過は良好で術後20日目 R.B.C 451万/mm³, HB 14.4g/dl, HT 42.0%と上昇し術後21日目で退院。

考 察

消化管の動静脈奇形は近年腹部血管造影検査や消化管出血シンチなどの検査の進歩により報告例は増加しているが依然として比較的稀な疾患であり消化管出血の原因として重要である。Meyer ら¹⁾によれば発生頻度は盲腸から右側結腸78%, 空腸10.5%, 回腸5.5%, 十二指腸2.3%, 直腸0.9%と報告しており本症例は回腸であり稀な疾患であると考えられた。また Moore ら²⁾は動静脈奇形を3type に分類し Type 1は右側結腸内に個々限局した病変, Type 2は先天性で小腸に見られ Type 1より病変部が大きく, 症状は多くが50歳までに出現する。Type 3は点状出血をきたす血管腫で遺伝性出血性血管拡張症 (Rendu-Osler-Weber syndrome) とされるもので遺伝性の血管奇形である。この論文の分類では本症例は, Type 2に相当すると考えられ発症年齢も40代後半で50歳前であった。彼らはこの論文の中で内視鏡, バリウム検査などによる検索では22%の症例で出血源を見逃すと述べており小腸出血に対しては直接診断は困難であり上部および下部消化管病変の除外診断しか出来ないと論じている。本症例においても初回入院時内視鏡およびバリウムによる上部および下部消化管造影検査では出血源の同定は出来ず出血シンチ⁸⁾⁹⁾および血管造影検査にて初めて診断が可能であった。Baum ら³⁾によれば動脈性出血は0.5ml/分以上あれば血管外漏出として診断可能であると述べている。このように血管造影検査にて診断がついた症例に関しては, 動脈塞栓術⁴⁾, 電気凝固術⁵⁾, 周囲血管結紮術⁶⁾, レーザー止血術⁷⁾が考えられているがいずれにしても確実な方法ではなく一般的には病巣部を含んだ腸切除が行われる。本症例では入院時貧血がきつく患者側の問題点として輸血拒否であったため確実に止血できる方法として開腹による小腸切除を行った。本症例では術中の小腸漿膜面の変化が明らかであり病変部の確認は比較的容易であったが術中内視鏡は病変部位確認に有効であったと考えられた¹⁰⁾。本症例では図7で認められたように動脈の蛇行硝子化所見が著明でありこれによる血流障害のため粘膜の萎縮細血管の増生があり腸内容の刺激にて粘膜が容易に脱落し細血管から出血を認めたと考えられた。粘膜の変化は長期に渡って生じたもので出血も少量ずつであったため著明な貧血にもかかわらず自覚症状が比較的軽度であり救命できたと考えられる。病変部の大きさは非常に小さな病

変の報告が多く回腸20cm 大の病変が最大¹¹⁾であり本症例はそれぞれの局所の病変は小さいが病変の広がりとしては100cm におよぶ本邦報告例では最大のAVMであった。

ま と め

消化管の動静脈奇形は非常に稀な疾患であり急性および慢性の消化管出血の原因として重要であるが通常の消化管検査では診断が困難であり血管造影検査, 出血シンチなどの検査が有効である。本症例のように術中の肉眼による病変部の確認が出来る症例は少なく術中内視鏡などによる病変部の確認を行い切除範囲を決定する必要がある。治療は病変部を含めた腸管の全層切除が必要と考えられた。今回われわれは非常に稀な回腸動静脈奇形を術前血管造影検査にて診断し小腸部分切除にて治癒せしめた症例を経験したので報告した。

文 献

- 1) Meyer CT, Troncale FJ, Galloway S, et al: Arteriovenous malformations of the bowel. An analysis of 22 cases and a review of the literature. *Medicine* 60: 36—48, 1981
- 2) Moore JD, Thompson NW, Appelman HD, et al: Arteriovenous malformations of the gastrointestinal tract. *Arch Surg* 111: 381—389, 1976
- 3) Baum S, Nusbaum M, Blakemore W, et al: Preoperative radiographic demonstration of intraabdominal bleeding from undermined sites by percutaneous selective celiac and superior mesenteric arteriography. *Surgery* 58: 797—805, 1965
- 4) Granmayeh M, Wallace S, Schwarten D, et al: Transcatheter occlusion of the gastroduodenal artery. *Radiology* 131: 59—64, 1979
- 5) Weaver GA, Alpern HD, Davis JS, et al: Gastrointestinal angiodysplasia associated with aortic valve disease: Part of a spectrum of angiodysplasia of the gut. *Gastroenterology* 77: 1—5, 1979
- 6) 種広建治, 高木 巖, 安井健三他: 大量出血を来した十二指腸動静脈奇形の1例. *日消外会誌* 83: 2602—2605, 1986
- 7) 水島和雄, 原田一道, 岡村毅与志他: 消化管出血に対するレーザー止血法. *胃と腸* 15: 733—738, 1980

- 8) Winzelberg GG, Mckusick KA, Froelich JW, et al: Detection of gastrointestinal bleeding with ^{99m}Tc -labeled red blood cell. *Semin Nucl Med* 12: 139—146, 1982
- 9) 森田誠一郎, 大園洋邦, 石橋正敏他: 救急医学における ^{99m}Tc -RBC を用いた救急消化管出血シンチグラフィ. *核医* 27: 459—466, 1990
- 10) 天目純夫, 笠原小五郎, 高橋正年他: 選択的動脈造影で診断した, 空腸動静脈形成異常の1例. *胃と腸* 14: 103—108, 1979
- 11) 武藤利茂, 村林紘二, 林 仁庸他: 回腸動静脈奇形の1例. *日臨外医会誌* 57: 2209—2213, 1996

A CASE OF ARTERIOVENOUS MALFORMATION OF THE ILEUM SUCCESSFULLY DIAGNOSED PREOPERATIVELY

Tomoki TOKUGAWA, Fumitaka MUTO, Hideaki KURIOKA, Takao OUCHI,
Hirotomo OTSUKA* and Yohei HOSOKAWA**

Department of Surgery, Emergency* and Pathology**, Kyoto First Red Cross Hospital

A 47-year-old woman had denied to receive blood transfusion for her religious reason was seen at the hospital because of anemia and anal bleeding on July 23, 1996. The patient was emergently admitted for severe anemia, who no abdominal findings were seen on upper and lower gastrointestinal endoscopic examinations. A remission in anemia was attained by administration of iron preparations and she was discharged from the hospital. But tarry stool started in October and the Ht was 23%. She was readmitted emergently. With a suspicion of Meckel's diverticulum or tumor of the small intestine, abdominal angiography was conducted which revealed dilated and serpentine vessels at the SMA ileal branch. An operation was performed on December 9, 1996, when intraoperative endoscopy visualized six small nodular elevations scattered over 100 cm from a portion 50 cm distant from the terminal ileum and an exposed part of vessel on the mucosa surface. The portion where the part of vessel exposed was diagnosed as arteriovenous malformation, and an excision of the ileum including the portion was carried out. Postoperative course was uneventful and the patient was discharged on January 9, 1997. Intestinal arteriovenous malformation has been known as a cause of intestinal bleeding, but it has been reported because it occurs uncommonly. Angiography and hemorrhagic scintigraphy are useful modalities. Few cases can be macroscopically confirmed for their lesions during operation. It is thought that was have to confirm lesions by intraoperative endoscopy to determine the surgical area.