

症例報告

大量出血をきたし緊急手術を施行した
大腸angiodysplasiaの1例上杉尚正, 竹重元寛¹⁾, 竹本圭宏, 原田栄二郎, 榎 忠彦, 濱野公一山口大学大学院医学系研究科器官病態外科学分野(外科学第一) 宇部市南小串1丁目1-1(〒755-8505)
周南記念病院外科¹⁾ 下松市生野屋南1-10-1(〒744-0033)

Key words: 大腸, angiodysplasia

和文抄録

繰り返す血便に対する経過観察中に、出血性ショックとなり緊急手術を施行した大腸angiodysplasiaの1例を経験した。症例は62歳、男性。約10年間の繰り返す血便を認めていた。腹部X線、CT検査上、小腸内に鏡面像を認めた。下部消化管内視鏡検査で、大腸内に出血源は認めなかった。出血シンチグラフィを撮影したが陽性所見は得られなかった。経過観察中、大量出血に伴う意識消失発作を認め緊急手術を施行した。術中全小腸内視鏡検査を施行したが、出血源は認めなかった。右側結腸内に出血が多かったため、結腸右半切除術を施行した。術後の病理組織検査で、盲腸angiodysplasiaと診断した。本症は比較的まれな疾患で、しばしば大量の消化管出血をきたし緊急処置を要する。出血性ショックをきたしたものの、緊急手術により救命しえた大腸angiodysplasiaの1例を経験したので報告する。

緒言

腸管のangiodysplasiaは拡張した微細血管が密に集簇する非腫瘍性病変であり、臨床的に腸管出血の原因となる。本邦では報告例が少ない疾患であるが、欧米では一つの疾患単位として確立しており、高齢者の下血の際には念頭におくべき疾患である。外山

ら¹⁾は本邦での消化管顕性出血のうち、本疾患によるものの頻度は0.2%程度と報告されている。その特徴として、主症状を欠き小病変のため出血部位の同定に難渋することが多く、時として出血性ショックをきたす程の病態に陥る危険性がある。今回、術前・術中診断が困難であったが、大量下血による出血性ショックより救命しえた大腸angiodysplasiaの1例を経験したので報告する。

症例

患者: 62歳, 男性。

主訴: 血便。

既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 2003年2月より時々血便を認めていた。2003年3月、頻回の血便を認め、精査目的で入院した。

血液検査所見: RBC: 177万/ μ l, Hb: 5.9g/dl, HT: 16.6%と高度な貧血を認めた(表1)。

上部消化管内視鏡検査: 特記事項なし。

下部消化管内視鏡検査: 盲腸にI s型の境界明瞭なポリープを認めた。出血は認めなかった(図1)。

小腸造影検査: 明らかな腫瘍性病変、憩室は認めなかった(図2)。

消化管出血シンチグラフィ: 有意な集積像を認めなかった(図3)。

この時点では出血源は不明で、短期間の絶食にて止血していたため経過観察されていた。2003年5月、

表1 Laboratory data on admission.

Hematology and Biochemistry					
WBC	6,000	/ μ l	TP	4.5	g/dl
RBC	177×10^4	/ μ l	ALB	2.9	g/dl
Hb	5.9	g/dl	BUN	10.7	mg/dl
Ht	16.6	%	Cre	0.8	mg/dl
Plt	11.3×10^4	/ μ l	TC	112	mg/dl
AST	24	IU/l	BS	181	mg/dl
ALT	18	IU/l	Na	141	mEq/l
LDH	123	IU/l	K	4.2	mEq/l
ALP	112	IU/l	Cl	106	mEq/l
TB	0.6	mg/dl	CRP	0.8	mg/l
DB	0.2	mg/dl			



图1

a) Colonoscopy revealed single sessile polyp in the cecum. b) Small bowel enema showed no gastrointestinal lesions. c) Abdominal scintigrams with ^{99m}Tc cannot detect a site of gastrointestinal bleeding.



图4



图5



图2

a), b) Abdominal X-ray and CT showed air-fluid levels in the intestine. c) There was no lesions causing hemorrhage detected on intraoperative total enteroscopy.

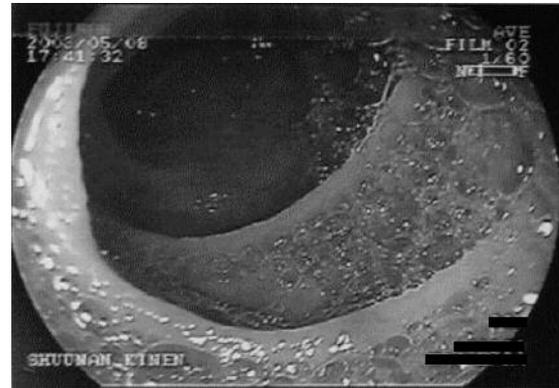


图6



图3

a), b), c) The resected specimen showed red mucosal protuberant mass measuring 5mm in diameter in the cecum (arrow). d) The area of mass contained clusters of dilated and tortuous thin-walled vessels associated with fibrosis and inflammatory cell infiltration in the mucosal layer (H.E. staining, x100).

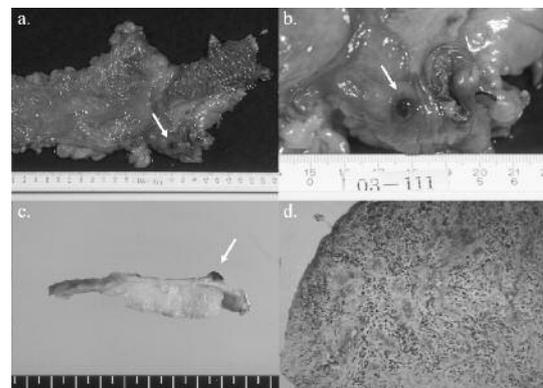


图7

大量の下血とともに意識消失し、救急搬送された。

血液検査所見：RBC：346万/ μl ，Hb：10.1g/d l，HT：30.3%と貧血を認めた。

腹部X線，CT検査：腸管内に鏡面像を認めた（図4，5）。

入院後経過：補液により全身状態は速やかに改善した。入院後5日目，再度大量の消化管出血を認め，ショック状態となった。鮮血便が継続し，血圧の維持が困難であったため，蘇生を行いつつ緊急手術を施行した。

手術所見：小腸出血を疑い，虫垂切除部位より内視鏡を腸管内へ挿入し，術中全小腸内視鏡検査を施行した（図6）。しかし，出血源は認めなかった。右側結腸内に出血が多かったため，angiodysplasiaを疑い結腸右半切除術を施行した。

切除標本：盲腸粘膜固有層に，径5mm大，鮮紅色サンゴ礁様，血管腫様病変を認めた（図7a，7b，7c）。

病理組織学的検査所見：腫瘍は粘膜固有層の不規則な血管腔の増生からなり，壁の薄い小血管の拡張，蛇行が著明であった。その周囲に線維化と炎症性細胞の浸潤を認めた（図7）。盲腸angiodysplasiaと診断した。

術後経過：術後11日目に軽快退院した。術後8年経過した現在，再発所見なく経過中である。

考 察

大腸angiodysplasiaは本邦では報告例が少ない疾患であるが，欧米では一つの疾患単位とされており，高齢者の下血の際には念頭におくべき疾患である。Boleyら²⁾は高齢者の下部消化管大量出血の原因として本疾患が関与する頻度は75%に至ると報告している。本症の下血は腹痛を伴わず突然発症し，しばしば大量で間欠的の反復性である。右側結腸に多く見られる限局性の血管性病変で，近年，本邦でも報告例が散見される。大腸angiodysplasiaは，1960年にMargulisら³⁾が消化管出血に対して，術中血管造影を用いてarteriovenous malformationとして報告したことが最初とされる。Mooreら⁴⁾は，腸管の血管形態異常の病型分類として発症年齢，遺伝性の有無，病変部位，肉眼的形態から3型に分類した。1型は右側結腸に孤立性，限局性に存在し，50歳以上

に好発。触診不可能なほど小さい病変で後天的に発生したもの。2型は若年者の小腸に好発し，触診可能な大きさで，先天性疾患と考えられる。3型は遺伝性出血性血管拡張症とされるものである。angiodysplasiaは後天性発生の動静脈奇形とされ，Mooreの1型に分類される。Durayら⁵⁾は後天性動静脈奇形をangiodysplasiaと規定した。Boleyら²⁾も同様の意見を提唱し，1つの疾患概念であると主張した。Boleyら²⁾のまとめたangiodysplasiaの臨床像を以下に列記する。①大部分が60歳以上。②他臓器に血管腫様病変がない。③慢性反復性下血歴，貧血を有する。④通常，血管造影検査がその診断根拠となる。⑤発生部位のほとんどが盲腸か上行結腸。⑥5mm以下の小病変が大部分。⑦手術時に発見が困難とされる。本症例もこの臨床像に合致し，盲腸原発angiodysplasiaと診断した。

本症は，高齢者の右側結腸に好発し，その診断は腹部血管造影検査，内視鏡検査あるいは出血シンチグラフィが有用とされている。緊急時は術中検索に委ねることになるが，術前・術中の原因特定は困難であることが多い。診断に有用とされる腹部血管造影検査でも，非出血時施行の場合は病変が描出されない。小腸原発（Moore 2型）の場合たとえ部位が同定されても，術中に漿膜側から病変部位を確認することは困難な場合が多い。よって，血管造影検査で病変が確認できれば，マイクロコイルを留置して術中透視で病変部位を同定したり⁶⁾，色素を注入し病変部腸管を染色することで病変部位を同定したという報告も認められる⁷⁾。その他の術前診断法として内視鏡検査があるが，大腸病変は本症例のように5mm以下の小血管塊病変がほとんどで，観察時出血しているとは限らず診断は困難である。術中内視鏡検査も有効とされているが⁸⁾，本症例のように腸管内出血が多い場合，小病変の同定は困難である。出血シンチグラフィは臨床的には0.2ml/分の出血でも描出可能とされ，活動性出血の有無を知るのに有用な場合があるが，出血源の部位診断は困難である。

本疾患は術前診断が困難とされ，緊急手術を要す場合が少なくない。開腹しても出血点の同定は困難で，全身状態が許せば術前にできる限り原因究明すべきである。近年では，カプセル内視鏡やダブルバルーン内視鏡が原因不明消化管出血の精査目的で施行可能であるが，本疾患は間欠型の出血形態を呈す

るため、病変部位の同定に難渋することが多い。本症例も、術中内視鏡施行時は責任病変からの出血は認めなかった。摘出標本の肉眼所見からも、盲腸 angiodysplasia の肉眼的破綻は認めなかった。しかし、大量出血、ショックをきたす例も多く、時期を逸することなく開腹して術中検索に委ねることも必要であると思われた。また、本症では5mm程度の小病変にも関わらず、大量下血の原因となることを念頭におき診断、加療にあたる必要があると考えられた。

結 語

緊急手術により救命しえた大腸angiodysplasiaの1例を経験した。

引用文献

- 1) 外山久太郎, 岡部治弥, 比企能樹ほか. 消化管出血の臨床統計. 北里医 1981 ; 11 : 201-213.
- 2) Boley SJ, Sammartano R, DiBiase A. On the nature and etiology of vascular ectasias of the colon. *Gastroenterology* 1977 ; 72 : 650-660.
- 3) Margulis AR, Heinbecker P, Bernard HR. Operative mesenteric arteriography in the search for the site of bleeding in unexplained gastrointestinal hemorrhage. *Surgery* 1960 ; 48 : 534-539.
- 4) Moore JD, Thompson NW, Appelman HD et al. Arteriovenous malformations of the gastrointestinal tract. *Arch Surg* 1976 ; 111 : 381-389.
- 5) Duray PH, Marcal JM, Jr. Brand MH et al. Small intestinal angiodysplasia in the elderly. *J Clin Gastroenterol* 1984 ; 6 : 311-319.
- 6) 中川泰生, 大平雅一, 竹内一浩ほか. 空腸 angiodysplasia の 1 切除例. 日臨外会誌 2003 ; 64 : 3082-3086.
- 7) 小松周平, 内藤宏之, 田村裕樹ほか. 空腸動静脈奇形による消化管出血により治療に難渋した 1 例. 日消外会誌 2003 ; 36 : 224-228.
- 8) Hartmann D, Schmidt H, Bolz G et al. A prospective two-center study comparing wireless capsule endoscopy with intraoperative endoscopy in patients with obscure GI bleeding. *Gastrointest Endoscop* 2005 ; 61 : 826-832.

A Case of Colonic Angiodysplasia with Massive Gastrointestinal Bleeding.

Naomasa UESUGI, Motohiro TAKESHIGE¹⁾, Yoshihiro TAKEMOTO, Eijiro HARADA, Tadahiko ENOKI and Kimikazu HAMANO

Department of Surgery and Clinical Science (Surgery I.), Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan 1) Department of Surgery, Shunan Memorial Hospital, 1-10-1 Ikunoyaminami, Kudamatsu, Yamaguchi 744-0033, Japan

SUMMARY

A 62-year-old man with a 10-year history of chronic recurrent intestinal bleeding was admitted to our hospital. Abdominal X-ray and computed tomography (CT) showed air-fluid levels in the intestine, but we were unable to find the site of gastrointestinal bleeding on colonoscopy or abdominal scintigrams with ^{99m}Tc. The patient subsequently passed massive bloody stool and collapsed, necessitating emergency surgery. Intraoperative enteroscopy showed no active bleeding site, however, on visual examination, we detected the predominant site of bleeding in the ascending colon. Thus, we performed right hemicolectomy. Histopathology of a polyp from the cecum revealed angiodysplasia. This case demonstrates that surgery should not be postponed for life-threatening hemorrhage, even when the bleeding site is not clear.