

症例報告

Segmental arterial mediolysis (SAM) による
腹腔内出血を来した1例野口哲央, 花園忠相, 森 健治¹⁾, 沖田幸祐²⁾, 坂井田功

山口大学院医学研究科消化器病態内科学分野(内科学第一) 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)

済生会下関総合病院 消化器内科¹⁾ 下関市安岡町8丁目5-1 (〒759-6603)社会保険下関厚生病院 消化器内科²⁾ 下関市上新地町3丁目3-8 (〒750-0061)

Key words : 分節性動脈中膜融解, segmental arterial mediolysis (SAM), 腹腔内出血, 腹部内臓動脈瘤

和文抄録

症 例

症例は65歳の女性で, 下腹部痛を主訴に受診し, 腹部CTで内臓動脈瘤破裂による腹腔内出血と診断された。血管造影検査では広範囲にわたって血管径の不整や動脈瘤が認められ, 回結腸動脈瘤が出血源と考えられた。動脈塞栓術にて症状は改善した。血管造影所見から分節性動脈中膜融解, segmental arterial mediolysis (以下, SAM) と診断された。TAE後1年10ヵ月のCTでは, 未治療の動脈瘤と血管狭窄は消失していた。SAMは比較的稀な疾患であり, 長期予後の報告もないため自然予後を理解する上で興味ある症例と思われるので, 報告する。

はじめに

分節性動脈中膜融解, segmental arterial mediolysis (SAM) は腹部内臓動脈瘤の成因の1つとして提唱され, 多くが突然発症の腹痛や出血性ショックを呈して診断される。今回我々は腹腔内出血を契機に診断され, 治療後の自然経過を追跡できたSAMの1例を経験したので報告する。

患者: 65歳, 女性。

主 訴: 下腹部痛。

既往歴: 心筋梗塞。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 2011年1月5日から排便困難と下腹部痛を自覚していた。1月7日に下腹部痛が増悪したため近医を受診した。腹部造影CT検査で腹腔内出血と上腸間膜動脈に動脈瘤が認められたため治療目的で同日当院入院となった。

入院時現症: 体温36.5°C, 血圧70/40mmHg, 脈拍100/分・整。

腹部は膨隆し臍部から下腹部正中にかけて圧痛が認められた。筋性防御および反跳性疼痛はなく腫瘍も触知しなかった。腸蠕動音は減弱していた。

表1 血液生化学所見

WBC	11200 / μ l
RBC	342 × 10 ⁴ / μ l
Hb	10.0 g / dl
PLT	47.2 × 10 ⁴ / μ l
CRP	1.17 mg / dl
IgG	1314 mg / dl
IgM	82 mg / dl
C3	147 mg / dl
C4	40 mg / dl
MPO-ANCA	10 mg / dl
PR3-ANCA	10 mg / dl
抗カルジオリピン抗体	陰性
抗核抗体	40倍

軽度炎症反応が上昇していたが, 免疫学的な異常所見は認められなかった。

血液生化学検査所見 (表1) : 血液検査では赤血球 342万/ μ l, Hb10.0g/dlと軽度貧血が認められた。白血球11200/ μ lと軽度増加傾向にあった。免疫学的な異常所見は認められなかった。

腹部造影CT : 動脈相で臍頭部下方に20mm大の動脈瘤が認められた。腹部全体に腹水が認められ腹腔内出血と診断された (図1)。

来院後経過

腹部CT所見と血圧低下をきたしていることから濃厚赤血球4単位を輸血した。

緊急上腸間膜動脈造影では、幹および分枝の口径不整、狭窄および拡張が、数珠状の血管および動脈瘤が認められた。回結腸動脈に20mmの動脈瘤が認められ、破裂動脈瘤と診断された (図2a)。

腸管への血流に注意しながら破裂動脈瘤のコイル塞栓術が施行された (図2b)。

術後腹痛は消失し、血圧および脈拍ともに安定した。

頭頸部血管狭窄や腎動脈狭窄は、それぞれ頭頸部MRI (図3a, b), 腹部MDCT (multi detector CT) では認められなかった (図3c)。循環器症状がなかったので冠動脈造影は行われなかった。以上の所見からSAMと診断された。血管内治療後症状は速やかに改善し1週間後退院とした。以後はMDCTにて経過観察された。

MDCT (発症3ヵ月後) : 上腸間膜動脈分枝の動脈瘤は残存していたが、上腸間膜動脈本幹の狭窄および拡張は改善していた (図4a)。

MDCT (発症1年10ヵ月後) : 上腸間膜動脈分枝の動脈瘤は消失していた。上腸間膜動脈本幹の狭窄は残存している (図4b)。



図1 腹部造影CT
臍頭部付近に動脈瘤と腹腔内出血が認められた。



図2a 腹部血管造影
回結腸動脈に瘤状の拡張が認められた。上腸間膜動脈は本幹から不整な狭窄と拡張が、その末梢には動脈瘤形成が認められた。



図2b 腹部血管造影
回結腸動脈瘤にコイル塞栓術を施行した。

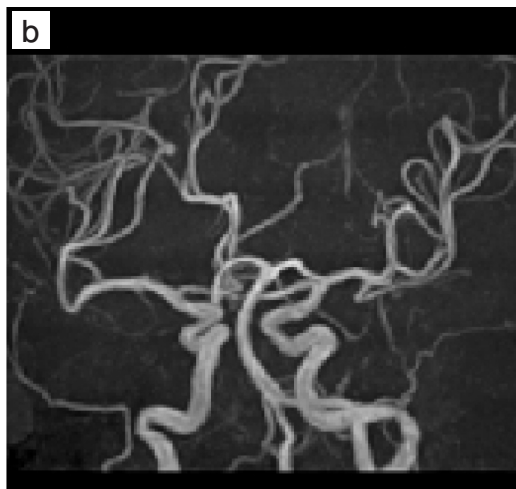


図3 a, b

頭頸部MRAでは動脈狭窄は認められなかった。

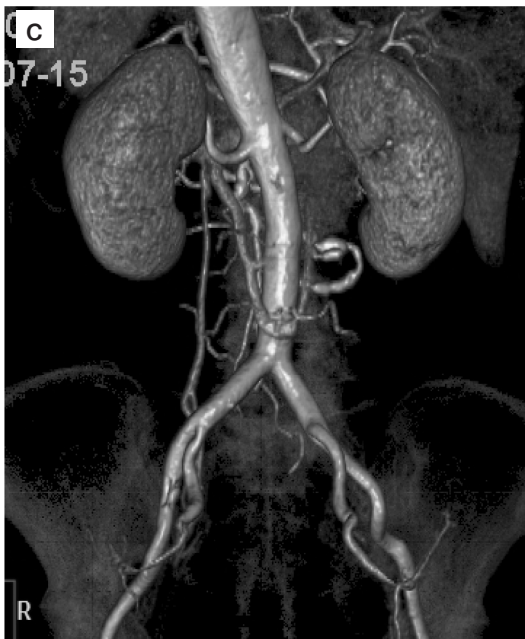


図3c

MDCTでは腎動脈狭窄は認められなかった。

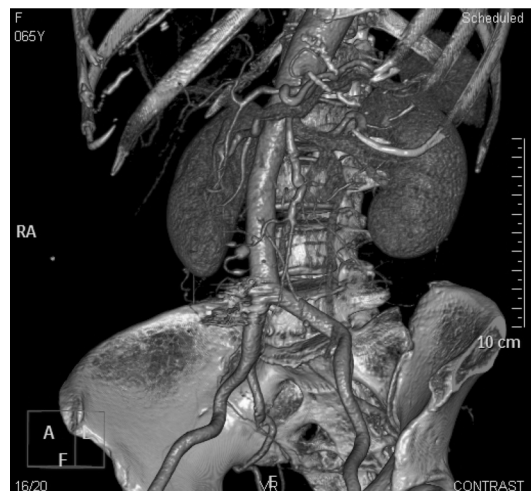


図4 a MDCT (Multidetector CT)

発症3ヵ月後. 上腸間膜動脈分枝に動脈瘤残存がみられ, 上腸間膜動脈本幹の狭窄, 拡張は改善傾向にあった.

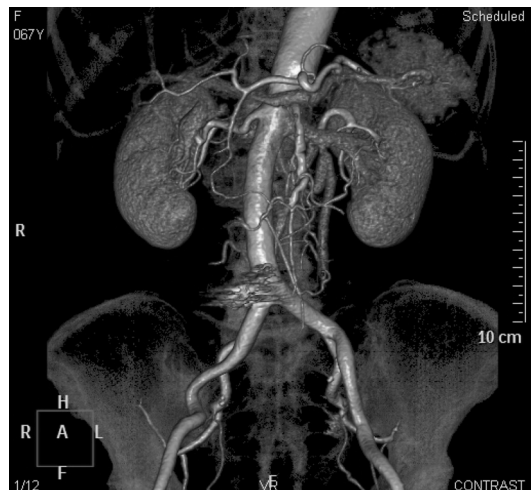


図4 b MDCT (Multidetector CT)

発症1年10ヵ月後. 上腸間膜動脈分枝の動脈瘤は消失. 上腸間膜動脈の狭窄は残存.

考 察

SAMは1976年にSlavinらが提唱した概念であり, そのほとんどが腹部大動脈臓器分枝の動脈瘤である¹⁾.

SAMの原因はいまだ不明であるが, 非炎症性・非動脈硬化性であることを前提とする.

SAMの病理組織学的特徴は動脈瘤壁に認められる中膜の残存 (medial island) であり, その病理学的変化は中膜の平滑筋細胞の空胞変性にはじまり, 次に外側から中膜の融解が起こり滲出やフィブリン沈着を伴った間隙形成を示してくる. この状態で内膜の断裂が起こり動脈壁が解離すると, 残された外膜が拡張して動脈瘤の形成に至るとされる²⁾.

内山らは病理組織学的検査所見が得られないSAMの臨床的診断基準として①中高齢者、②炎症変化・動脈硬化性変化などの基礎疾患がないこと、③突然の腹腔内出血で発症すること、④血管造影検査にて血管に数珠状の不整な拡張と狭窄が認められることを挙げている³⁾。

多くの血管炎はSAMと同様の画像所見を呈するが血液生化学検査で免疫学的な異常の有無で除外できる。病理学的に類似している線維筋性異形成、fibromuscular dysplasia (FMD) が最も鑑別が難しい疾患であるが、FMDは若年～中年女性の頻度が高く、たいていは無症候性か狭窄による虚血症状を呈すること、多くは腎動脈、内頸動脈に病変が出現し、腎外病変は9%とまれであることで鑑別可能と考えられる⁴⁾。

本例では心筋梗塞の既往があったが、頸動脈や腎動脈に狭窄はなかったので全身の血管の動脈硬化性変化はないと判断され、また血液生化学検査で免疫学的な異常所見がなかったことから、SAMの診断は妥当と考えられた。

腹部内臓動脈瘤の頻度は人口の1%とされ、Stanleyらの報告では脾動脈60%、肝動脈20%、上腸間膜動脈5～8%、腹腔動脈4%、胃および胃大網動脈2～4%、小腸および結腸動脈2～3%、脾十二指腸動脈2%である⁵⁾。一方SAMは部位別で見ると中結腸動脈が38%、胃大網動脈20%、胃動脈17%、脾動脈11%となっている。また34.6%が多発例であることが特徴といえる⁶⁾。

腹部内臓動脈瘤破裂は予後不良であり死亡率は脾動脈破裂25%、肝動脈破裂35%、脾十二指腸動脈破裂50%と報告されている⁵⁾。

稲田らの報告によると破裂および有症状を呈したSAM52例中、保存的治療7例は全例死亡している。それに対して開腹手術の死亡率は2/45 (4.4%) と良好であることから原則として破裂例には早急な治療が必要であるといえる⁶⁾。同様に小熊らの31例の集積結果では開腹手術もしくは血管カテーテル治療を施行した場合死亡率3.2%と予後は比較的良好である⁷⁾。

本症では血圧低下が認められ、救命処置の適応であったと考えられる。しかし保存的治療で改善した報告例も散見され、その場合はvital signが安定していること、血管カテーテル検査で活動性出血がない

こと、腸間膜内という限られた領域に血腫が形成され自然止血されることが条件として挙げられる^{8, 9)}。

血管造影で確定診断後、引き続き血管カテーテル治療に移行するのが第一選択とされる¹⁰⁾。

血管カテーテル治療が困難または不成功の場合に外科手術が選択されている。

本例では、概ね経過良好と判断される。稲田らは病理学的に初期病変からの経過を推測しているが、基本は解離性動脈瘤で破裂すれば仮性動脈瘤の形態となり、未破裂動脈瘤は中膜と外膜の線維化により修復され、比較的小さな動脈で修復機転が生じるとFMD様の変化となると推測している²⁾。病変の経過日数は不明な点が多いが坂野らはSAMによる中結腸動脈瘤破裂の緊急手術後の血管造影で腹部内臓動脈に複数のSAM関連病変が認められ、術後25日目、58日に血管造影での病変の推移の検討ではまず動脈の拡張、次いで狭窄性病変が進展し、病変が治癒するという3段階の経過をとると指摘している。同報告では9年の生存が確認されている¹¹⁾。

宮路らも中結腸動脈瘤破裂の緊急手術後の血管造影で上腸間膜動脈系にSAM関連病変を認めたが1年10ヵ月後の血管撮影でそれらが消失したことを報告している¹²⁾。山際らもMDCTで2年後に消失した例を報告している¹³⁾。

本例では、治療後で経過観察されており、発症3ヵ月後のMDCTでは動脈瘤が残存していたが、1年10ヵ月後では血管狭窄の改善や動脈瘤の消失が認められた。SAMの自然経過という点で興味深い。また低侵襲かつ詳細な評価が可能であることから経過観察にはMDCTが推奨される。

現時点では動脈瘤が多発していても破裂部のみを治療し、他の残存した動脈瘤が破裂したとの報告はない。

保存的治療後の再出血に関してはまれであるが、大屋らは保存的治療にて退院後3週間目に再破裂を生じた例を報告している¹⁴⁾。報告では出血時には中結腸動脈左枝の数珠状変化を認めていた。

また未治療の動脈瘤に関しては解離性の拡張が指摘され1年6ヵ月後に出血を生じた例が報告されている¹⁵⁾。

これらの報告からも解離性変化や拡張性変化がある場合は破裂の可能性も念頭に経過を見ていく必要があると思われる。

今後も症例の蓄積が必要であるが、現時点では予後良好の疾患と認識しつつ2～3年は慎重に経過を追っていく姿勢が重要と考えられる。

結 語

急性腹症や出血性ショックで来院し、原因不明の腹部内臓動脈瘤が見られた場合はSAMを考慮して治療に当たる必要があり、SAMの破裂例に対し緊急止血処置で救命しうることが示唆された。破裂領域以外の動脈瘤に関しては慎重に経過観察を行う必要があると考えられた。

引用文献

- 1) Slavin RE, Gonzalez-Vitale JC. Segmental mediolytic arteritis: a clinical pathologic study. *Lab Invest* 1976; 35: 23-29.
- 2) 稲田 潔, 池田庸子, 平川栄一郎. Segmental arterial mediolysis (SAM) 最近の本邦報告例について. *病理と臨床* 2003; 21: 1165-1171.
- 3) 内山大治, 小金丸雅道, 安陪等思. 原因に segmental mediolytic arteriopathy が疑われた腹腔内出血例に対し塞栓術が有用であった1例. *IVR* 2005; 20: 278-281.
- 4) Chao. Segmental Arterial Mediolysis. *Seminars in Interventional Radiology* 2009; 26: 224-232.
- 5) Stanley JC, Wakcfield TW, Graham LM, et al. Clinical importance and management of splanchnic artery aneurysm. *J Vasc Surg* 1986; 3: 836-840.
- 6) 稲田 潔, 池田庸子. Segmental arterial mediolysis (SAM) 52例の検討 - 2, 3の問題点について -. *病理と臨床* 2008; 26: 185-194.
- 7) 小熊潤也, 青木正彦, 細田 桂. 術前CTで診断し緊急開腹手術で救命しえた特発性中結腸動脈瘤破裂の1例. *日消外会誌* 2008; 41: 146-151.
- 8) 合志健一, 江口大彦, 原田 昇. 保存的に経過観察しえた中結腸動脈瘤破裂と考えられた腹腔内出血の1例. *臨床外科* 2011; 66: 243-245.
- 9) 石崎康代, 福田敏勝, 中原雅浩ほか. 保存的治療が可能であった腹部内臓動脈瘤破裂による腹腔内出血の2例. *日臨外会誌* 2008; 69: 776-780.
- 10) 高橋秀雄, 小林裕之, 田村 亮. 当院における腹部内臓動脈瘤破裂9例の検討. *日臨外会誌* 2009; 70: 2303-2308.
- 11) Sakano T, Morita K, Imaki M, et al. Segmental arterial mediolysis studied by reported angiography. *Br J Radiol* 1997; 70: 656-658.
- 12) 宮路正彦, 蜂須賀喜多男, 山口晃弘. 中結腸動脈瘤破裂の2例 - 報告例の文献的考察. *臨床外科* 1985; 10: 1601-1607.
- 13) 山際武志, 守田誠司, 大塚洋幸. 中結腸動脈瘤破裂により発症したSegmental arterial mediolysis (SAM) の1例. *日救急医学会誌* 2009; 20: 265-269.
- 14) 大屋久晴, 永田二郎, 森岡祐貴. Segmental arterial mediolysisによる中結腸動脈瘤破裂で腹腔内出血・下血を来した1例. *日消外会誌* 2010; 43: 293-298.
- 15) 鳩貝 健, 中澤 敦, 瀧田麻衣子. 無症候性に発症し十二指腸穿孔による消化管出血を契機に診断された肝動脈瘤の1例. *日消誌* 2012; 109: 247-254.

A Case of the Intraabdominal Hemorrhage due to Segmental Arterial Mediolysis (SAM).

Norio NOGUCHI, Tadasuke HANAZONO, Kenji MORI¹⁾, Kousuke OKITA²⁾ and Isao SAKAIDA

Department of Gastroenterology and Hepatology (Internal Medicine I.), Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan 1) Department of Gastroenterology, Saiseikai Shimonoseki General Hospital, 8-5-1 Yasuokachou, Shimonoseki, Yamaguchi 759-6603, Japan 2) Department of Gastroenterology and Hepatology, Social Insurance Shimonoseki Kohsei Hospital, 3-3-8 Kamishinchichou, Shimonoseki, Yamaguchi 750-0061, Japan

SUMMARY

A 65-year-old woman admitted for lower abdominal pain and hypotension.

A ruptured abdominal visceral aneurysm with intraabdominal hemorrhage was shown on abdominal computed tomography (CT).

Wide-ranging irregularity in vascular diameter and aneurysm was shown on angiography, suggesting a rupture of an aneurysm of the cecal-colic artery.

Hemostasis was achieved by transcatheter arterial embolization (TAE) with microcoils.

These findings are attributed to segmental arterial mediolysis (SAM) in this case.

The multiple untreated aneurysm and narrowing had almost disappeared on CT 1 year and 10 after the TAE.

The natural history of a relatively rare SAM treated by TAE was interesting and valuable in this case.