

大量下血を繰り返した小腸粘膜下海綿状血管腫の一例

済生会奈良病院外科

長尾 美津男, 藪内 裕也, 仲川 恵三, 島田 健太郎

A CASE OF CAVERNOUS HEMANGIOMA OF THE SMALL INTESTINE WITH REPEATED MASSIVE BLEEDING

MITSUO NAGAO, HIROYA YABUUCHI,
KEIZO NAKAGAWA and KENTARO SHIMADA

Department of Surgery, Saiseikai Nara Hospital

Received October 21, 1996

Abstract: We present a case of hemangioma of the small intestine with repeated massive bleeding. A 57-year-old woman repeated massive bleeding three times from February 1993 to July 1994. In the meantime endoscopic examination, enterography and abdominal angiography were performed and we detected an abnormal lesion in enterography. But we could not diagnose the cause of bleeding because the abnormal lesion was not recognised in angiography. At the third incidence of bleeding we performed an emergency operation. At the laparotomy a dark red, flat and soft tumor was found in the small intestine at 100 cm's distance from Treits ligament and a partial resection of jejunum was performed. By the microangiography of the resected specimen and histological examination, the tumor was diagnosed as a cavernous hemangioma of the small intestine. Techniques for efficient examination of the small intestine are not well established as compared to the other areas of the digestive tract. Therefore in this case we detected the abnormal lesion with enterography but we could not recognise any abnormal findings in angiography. As a result we were able to detect the hemangioma of the small intestine for the first time during the operation. The intestinal hemangioma is a rare case and it is difficult to diagnose the cause of bleeding as intestinal hemangioma without an abnormal finding in angiography. It is necessary that we suspect that massive bleeding may be due to intestinal hemangioma when we cannot presume the origin of massive bleeding.

Index terms

angiography, intestinal hemangioma, massive bleeding

要 旨

大量下血を繰り返した小腸血管腫の一例を経験したので報告する。症例は57歳女性で、平成5年2月から平成6年7月にかけて3度の大量下血を繰り返した。その間、内視鏡検査・小腸造影・血管造影などが施行され、小腸造影にて病変部は指摘できたが、血管造影では異常は認めず、術前診断は困難であった。3度目の下血時に緊急

手術を施行し、Treitz 靱帯より100 cm 肛側の空腸に長径6 cm 大の暗赤色・平坦・軟な腫瘤を認め空腸部分切除を施行した。摘出標本のmicroangiography及び組織学的検索にて小腸海綿状血管腫と診断した。小腸病変は確実な検査法がなく、本症例も小腸造影にて病変の存在は確認できたが、血管造影では異常を認めず、手術にて初めて血管腫の診断を得た。小腸血管腫は稀な疾患であり、血管造影で異常がなければその診断は困難であるが、大

量下血を認めた場合、小腸血管腫も考慮する必要がある。

はじめに

近年消化管内視鏡検査の進歩と普及に伴い、上部および下部消化管出血の原因診断と治療法は向上している。しかし、小腸における有効な検査法は確立されていないため、小腸出血に起因する下血の診断は困難である。今回われわれは、大量下血を繰り返し、術前診断が得られなかった空腸血管腫の1例を経験したので報告する。

<症例>

患者：57歳，女性

主訴：下血

家族歴：父親 胃癌

既往歴：24，29歳時に帝王切開

現病歴および経過：平成5年2月中旬，感冒症状が出現したため近医受診し，投薬を受けた。その後，心窩部痛および下痢が出現し，2月22日には下血が出現した。翌23日には下血が頻回となり当院内科紹介入院となった。入院時，血圧86 mmHg(触診)で，眼瞼結膜は貧血著明であった。また，血液検査ではRBC $129 \times 10^4 / \mu\text{l}$ ，Hb 4.0 g/dl，Ht 1.4%と著明な貧血を認めた。

入院後，直ちに輸血を施行し，上部消化管内視鏡検査を行ったが，出血源は認められなかった。入院翌日の24日には，下部消化管内視鏡検査を施行したが，回盲部に凝血塊を認めるのみで明らかな出血源は認められなかった。26日には腹部出血造影を施行したが，腸管への造影剤の extravasation や pooling, tumor stain は認められなかった (Fig. 1)。さらに，小腸造影，メッケル憩室シンチも施行したが，病変は認められなかった。この間，下血は一度も認められなかったため4月12日退院となった。以後は下血のエピソードもなく外来にて follow up されていた。しかし，平成5年7月21日昼頃から，大量の下血が認められたため，内科に緊急入院となった。輸血を施行し，状態が安定した時点で小腸造影を施行した。小腸造影では，Treitz 靭帯より肛側100 cmの空腸に6 cmにおよぶ cobble stone 様の多発隆起性病変と壁の伸展不良を認め，小腸型クローン病による下血と診断した (Fig. 2)。その後は一度も下血は認められず，8月15日に退院となったが，平成6年10月11日再度大量下血が出現したため，手術目的にて外科紹介となり，10月21日緊急手術を施行した。

手術所見：中腹部正中切開にて開腹した。小腸を検索したところ，Treitz 靭帯より100 cm肛側の空腸に6 cmにおよぶ暗赤色・顆粒集簇状の平坦・軟の腫瘤を腸管全周に認めた (Fig. 3)。血管腫と判断し，腫瘍を含め空腸を

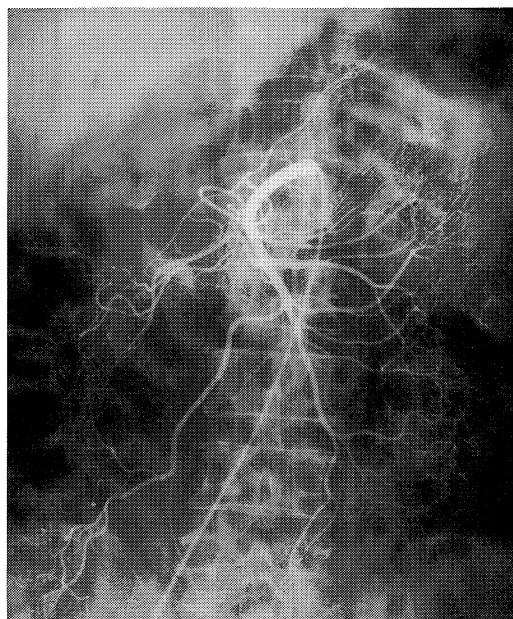


Fig. 1. Superior mesenteric angiography showed no abnormal lesion.



Fig. 2. Enterography showed a segmental lesion consisting of multiple nodular filling defects in the small intestine at 100 cm's distance from Treitz ligament.

30 cm 切除した。この際、術後の microangiography を目的に、血管腫の main feeder と考えられた空腸血管枝は最後に処理し、処理後直ちにヘパリン入り生理食塩水で還流した。術後経過は良好で11月2日退院となった。

摘出標本および組織所見：摘出標本では長径6 cm に

およぶ多発結節状隆起性病変を腸管全周に認め、病変部の粘膜には異常を認めず、粘膜下腫瘍の形態を呈していた (Fig. 4)。main feeder から大量の生理食塩水を注入し、血栓を除去した後 microangiography を施行した。造影剤の綿花状 pooling を認め、海綿状血管腫と診断し

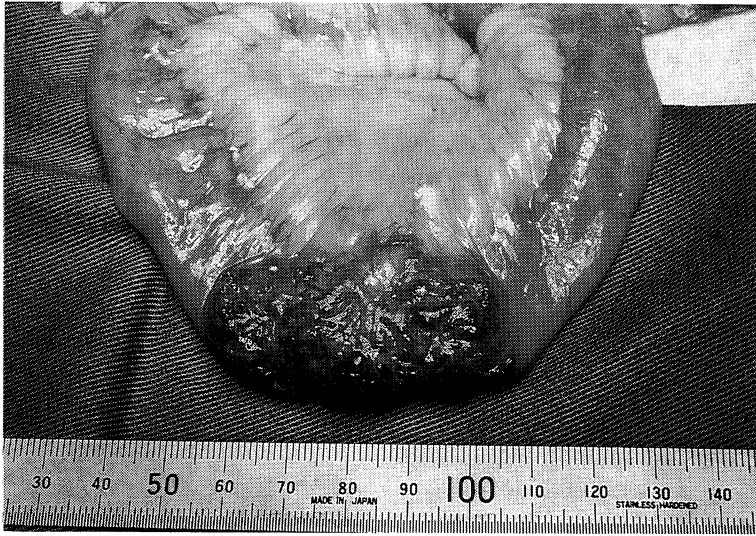


Fig. 3. At the laparotomy, a dark red, flat and soft tumor was found in the small intestine at 100 cm's distance from Treitz ligament.



Fig. 4. Macroscopic findings show the submucosal tumor composed of multiple nodular protrusions.

た (Fig. 5). 固定後の断面では、粘膜下層を中心に筋層におよぶ管腔構造を多数認め、一部の内腔には血栓を認めた (Fig. 6). 病理組織検査では、粘膜下層から筋層にかけて多数の管腔構造を認め、内腔は一層の内皮細胞でおおわれていた。一部の管腔内には血栓も存在しており、海綿状血管腫と診断した (Fig. 7).

〈考察〉

小腸出血を来す病変には、平滑筋腫や平滑筋肉腫、神経原性腫瘍、癌などの小腸腫瘍、動静脈奇形や動脈瘤などの血管性疾患、Crohn病などの炎症性疾患やメッケル憩室などがある¹⁾。小腸腫瘍は全消化管腫瘍の3~6%を占めるにすぎない²⁾。またその中で、小腸良性腫瘍は小

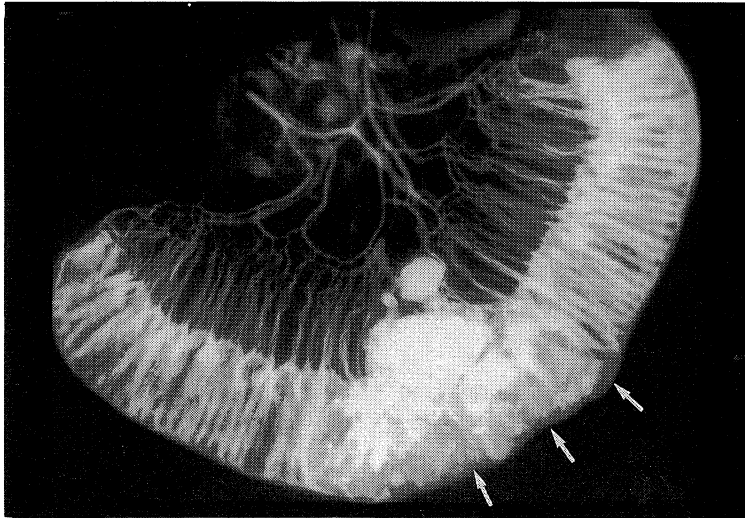


Fig. 5. Microangiography of the resected specimen shows cotton wheel appearance.
The filling defect (arrow) is appeared to be caused by thrombuses in the small vessels.

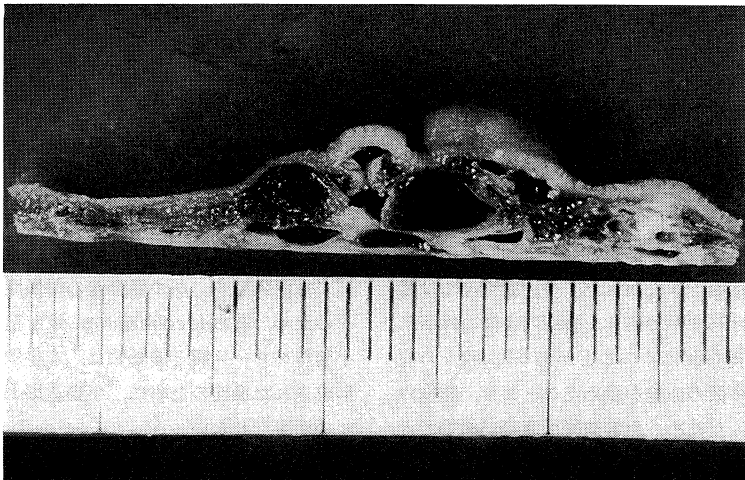


Fig. 6. Cut surface of the tumor shows many ducts in the submucosal and muscle layer. Thrombus is recognised in some ducts.

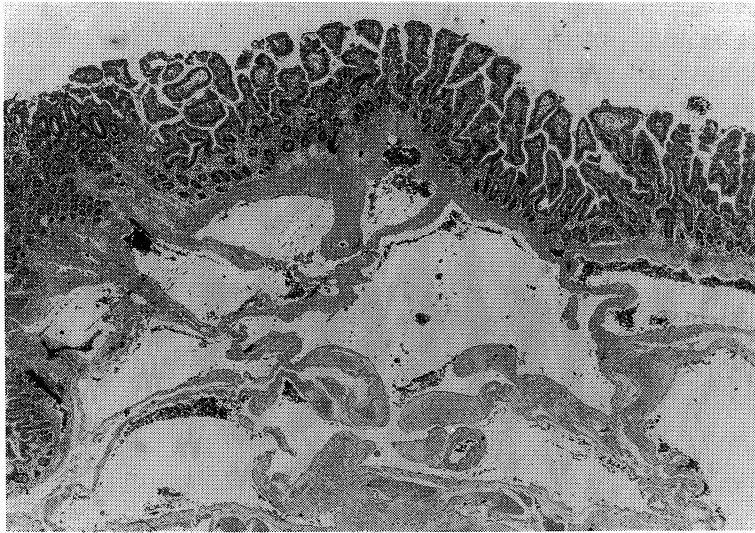


Fig. 7. Histological examination of the tumor shows many small vessels in the submucosal and muscle layer.

腸腫瘍の40%前後を占め、血管腫は小腸良性腫瘍の10%足らずを占めるにすぎない稀な疾患³⁾である。

小腸においては上部および下部消化管における内視鏡検査のような有効な検査法が確立されていないため、その診断は現在でも困難である。しかし、急性下部消化管出血にしろ小腸疾患の割合は15~30%^{4,5)}と少なくない。したがって、下血を主訴とした患者で、上部・下部消化管内視鏡で病変を認めなければ、小腸病変を考え、小腸造影、血管造影、Tcシンチグラム等を施行する必要がある。とくに血管造影は有用との報告があり、渡辺¹⁾は、本邦で報告されている小腸出血の116例中57例(49%)に血管造影が施行されており、局在診断が可能であったのは93%と高率であったと報告している。しかし、血管造影では、造影時に0.5ml/分以上の動脈性出血がないと血管外漏出像が得られない⁶⁾とされており、適切な時期に造影しなければ診断できない。我々の症例でも、下血・顕性貧血を主訴として来院し、小腸出血を考え腹部血管造影および小腸造影を施行したが、初回入院のときには小腸病変は指摘できなかった。小腸血管腫では動脈からの血液流入はわずかであり、腫瘍内血液の停滞により腫瘍濃染像が得られにくいことがあり⁷⁾、我々の症例でも血管腫内に多数の血栓を認めたことより、腫瘍内血液の停滞が強かったため、血管造影で病変が指摘できなかったものと思われる。

小腸血管腫に関しては、神長⁸⁾は本邦で報告された58例の血管腫を検討し、半数以上がTreitz靭帯より肛

側へ1m以内の空腸もしくは回腸末端より口側1m以内の回腸に発生し、症状としては下血が多く約半数に認められ、その中でも大量下血は70%近くに認められたとしている。また、小腸血管腫と術前診断された症例は10例(17.2%)で、全例が消化管以外にも血管腫を認めたため診断可能であった症例としている。一方伴登⁹⁾が78例の血管腫報告例を検討し、術前診断が可能であったのは9例にすぎず、その術前検査としては小腸造影と腹部血管造影が有効であったとしている。我々の症例でも、小腸造影にて局在診断は可能であったが、質的診断には至らなかった。小腸造影上、血管腫に認められる所見としては結節状の陰影欠損を呈し、これが圧迫により簡単に消失すること¹⁰⁾、病変部の粘膜表面に潰瘍や癒痕を示す粘膜集中はなく、腸管壁の伸展性がよく保たれていることなど¹¹⁾が挙げられており、本症例でも1度目の小腸造影で病変が確認できなかったのはこの理由によるのかもしれない。2・3度目の小腸造影時には、病変は指摘できたが、多発性の結節状陰影欠損を認め、これが圧迫にても消失せず、かつ腸管壁の伸展性も失われていた。そのため、造影上cobblestone像を呈しているとみなし、小腸型クローン病と診断した。本症例では、血管腫内に形成された血栓のために、小腸造影上このような像を呈したのかもしれない。

消化管血管腫は稀な疾患でありかつ小腸は検査法が確立されていないこともあり、下血を診察した時点で、小腸血管腫を鑑別診断に加えることは困難であると思われ

る。検査を進め、小腸出血が疑われたならば、早急に小腸造影・血管造影を行うべきであろう。内視鏡による処置が可能な部位にある血管腫に対しては、硬化療法やポリペクトミーが行われる¹²⁾が、小腸血管腫に対しては、内視鏡処置は困難であり、外科的切除が一般に行われており、予後も良好である。

結 語

大量下血を繰り返した小腸血管腫の一例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) 渡辺幸康, 豊島宏, 坂東隆文, 他: 小腸大量出血—自験6例と本邦110例の検討—. 臨牀外科 43: 397-404, 1988.
- 2) 梶谷 鑲, 高橋 孝: 腸癌; 診断に有用な数値表. 日本臨牀 32: 2276-2291, 1974.
- 3) Good, C. A.: Tomors of the small intestine. Am. J. Roentg 89, 685-705, 1963.
- 4) Briley, C. A., Jackson, D. C., Johnsrude, I. S. et al: Acute gastro-intestinal hemorrhage of small bowel origin. Radiology 136, 317-319, 1980.
- 5) Casarella, W. J., Galloway, S. J., Taxis, R. N., et al.: "Lower" gastro-intestinal tract hemorrhage: new concepts based on arteriography. Am. J. Roentg. 121, 357-368, 1974.
- 6) Nusbceum, M., Baum, S.: Radiographic demonstration for unknown sites of gastrointestinal bleeding. Surg. Forum 14: 374-375, 1963.
- 7) 松村修志, 常喜信彦, 中島俊一, 他: 胃の巨大血管腫の1例. 消化器内視鏡の進歩 42: 192-196, 1993.
- 8) 神長憲宏, 佐竹儀治, 片倉重弘, 他: 大量下血を来した小腸血管腫の一例. 日消誌. 90, 1459-1462, 1993.
- 9) 伴登宏行, 酒徳光明, 荒川龍夫, 他: 腹部血管造影で診断し得た小腸血管腫の一例. 日消誌. 8: 1528-1531, 1992.
- 10) Marshak, R. H., Linder, A. E.: Radiology of the small intestine. Philadelphia, WB Saunders Co, p 284, 1976.
- 11) 藤田直孝, 望月福治, 他: 小腸海綿状血管腫の1例. 胃と腸 20: 1021-1025, 1985.
- 12) 安藤 博, 三森教雄, 若林真理, 他: 消化管の血管腫. 消化器内科 10: 479-487, 1995.