OUKA
The University of Osaka
Institutional Knowledge Archive

Title	先天性と思われる多発性上腸間膜動静脈奇形の一例
Author(s)	松本, 邦彦; 村上, 優子; 宇野, 公一 他
Citation	日本医学放射線学会雑誌. 1977, 37(9), p. 848-855
Version Type	VoR
URL	https://hdl.handle.net/11094/15388
rights	
Note	

The University of Osaka Institutional Knowledge Archive : OUKA

https://ir.library.osaka-u.ac.jp/

The University of Osaka

先天性と思われる多発性上腸間膜動静脈奇形の一例

越谷市立病院 放射線科

松本 邦彦* 村上 優子 宇野 公一
益永 陽子 安河内 浩

(昭和52年3月24日受付)
(昭和52年4月22日最終原稿受付)

A Case of Diffuse Superior Mesenteric Arteriovenous malformation Considered Congenital in Origin

Kunihiko Matsumoto*, Yuko Murakami, Kimiichi Uno,
Yoko Masunaga and Hiroshi Yasukochi
Department of Radiology, Koshigaya City Hospital

Research Code No.: *513*
Key Words: *Superior mesenteric arteriovenous malformation, Angiography, Esophageal varices*

A case of 40-year-old man, with diffuse superior mesenteric arteriovenous malformation considered congenital in origin, is presented. Arteriovenous malformation involving mesenteric vessels are rare. The 23 cases previously reported were mostly iatrogenic or traumatic in origin. The present case is the third case of congenital origin in the literature. In most cases, palpable thrill and abdominal bruit were common signs.

Symptoms usually consist of crampy abdominal pain, watery diarrhea, fever, leucocytosis and portal hypertension (ascites, varices). In this case, jejunal branches and ileal branches are diffusely involved, so we could not resect the malformation completely.

This is the first case which involved the jejunal branches and ileal branches diffusely.

はじめに

腸間膜動静脈奇形は，稀な疾患であり，1960年の Movitz[1] の報告以来現在まで23例報告されている．報告例の大多数は，手術後又は，銃創によるものであり，先天性のものは，1971年 Anderson[2] によりはじめて報告されている．我々は最近吐血を主訴として来院した患者に出血部位の検出及び血行動態の検査を目的として，腹部血管造影を行なつた所，先天性と思われる広範囲の多発性上腸間膜動静脈奇形の一例を経験したので報告する．本例ほど広範で空腸枝，回腸枝に多発したものは今まで，報告がなかつた．

症 例

患者は40歳の男性，主訴は吐血である．家族歴は父が胃癌で死亡している以外特になく，又，既往歴にも特にない．現病歴としては，昭和51年2月頃より，心窩部痛あり，同年3月胃透視，内視鏡検査を実施し，前庭部に，びらんを指摘されたのみで，本院放射線科外来にて投薬を受けてい

* 現京都府立医科大学放射線医学教室
Present address Department of Radiology, Kyoto Prefectural University of Medicine

た．その当時食道病変はX線診断学的にも，内視鏡的にもみられていない．同年7月20日に，80kgの鉄材が車から落下し，背中にあたり前に倒れて腹部を打撲した．某医院に3日間入院したが，特に変化なく退院した．8月2日午後突然吐血が，約200ml あり，その後も吐血が続くので，8月3日放射線科に緊急入院となつた．

入院時現症は，体格栄養共に中等度で，脈搏数76/min で緊張良好，整，血圧は，118/60mmHg 球結膜に黄疸なく，眼瞼結膜に貧血がみられた．頚部リンパ節触知せず．右背中に打撲による発赤がみられた．打聴診で心肺に異常なかつた．腹水はみられず，左腹部に圧痛はあつたが，拍動や血管雑音はなかつた．

Table 1の如く，RBC $248\times10^4/mm^3$, Hb 7.4 g/dl, Ht 22.6%で高度の貧血がみられた．便潜血反応は3（+）であつた．血清学的には CRP（−）ASLO 166単位以下であつた．肝機能検査では，γ-GTP が33でやや高値を示すほか異常なかつた．

Table 1. 〔laboratory data〕

WBC	6,800	urinalysis : normal	
RBC	248×10^4	feces : occult blood	
Hb	7.4 g/dl		(卌)
Ht	22.6 %		
Urea-N	22 mg/dl	Protogram	
Na	119 mEq/l	TP	5.3 g/dl
K	3.9mEq/l	A/G	2.0
Cl	106 mEq/l	Alb	67 %
		α1	3.8 %
GOT	18 mU/ml	α2	8.6 %
GPT	8 mU/ml	β	10.2 %
Al-P	23 mU/ml	γ	10.1 %
LAP	18 mU/ml		
LDH	183 mU/ml	ASLO	166
γ-GTP	33 mU/ml	CRP	(−)
TTT	0.9 U	HB	(−)
ZTT	3.2 U	ECG : myocardial injury	

放射線検査所見

胸部単純撮影では，肺野に著明な変化なく心肥大もみられない．

バリウム経口による食道造影では，食道下部に

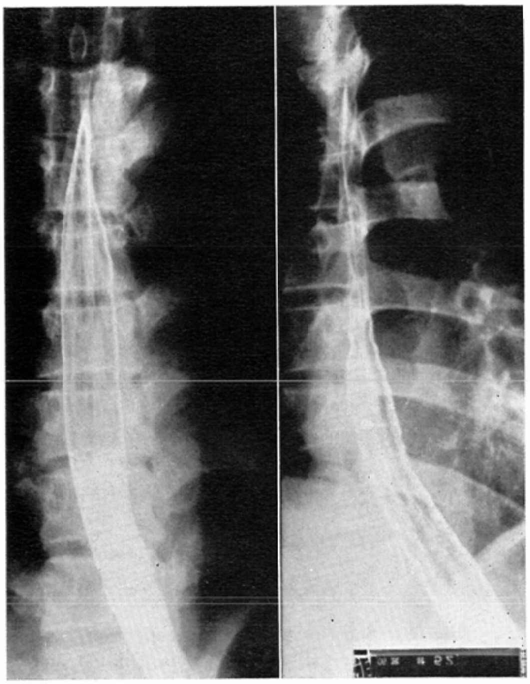


Fig. 1. Esophagogram with barium. Slight varices are demonstrated in the lower esophagus.

軽度静脈瘤がみられる．（Fig. 1）緊急内視鏡検査では，門歯列より30cm の部位より，白青色蛇行した静脈瘤が見られ，40cm の部位より出血していた．

上腸間膜動脈造影では，1.7秒後（Fig. 2 a）に，上腸間膜動脈は太く拡張し，その枝も末梢まで太くなつている．上方に食道内に留置した Blakemore tubeがはずれて胃内に下降しているのが見られる．4秒後の動脈相（Fig. 2 b）では，空腸枝，回腸枝に動静脈奇形が多発しており，動脈相早期より太く拡張した上腸間膜静脈が造影されている．5.3秒後の静脈相（Fig. 2 c）では，多発性の動静脈奇形が残存し，非常に太い上腸間膜静脈に造影剤が流れている．

大動脈造影側面像では，大動脈が太く拡張した上腸間膜動脈を分岐後急に細くなるのが見られる（Fig. 3）．

バリウム 100ml 飲用後2時間後の小腸追跡造影（Fig. 4）では，空腸に stacked coin appearance がみられ，壁内出血が疑われた．^{99m}Tc-

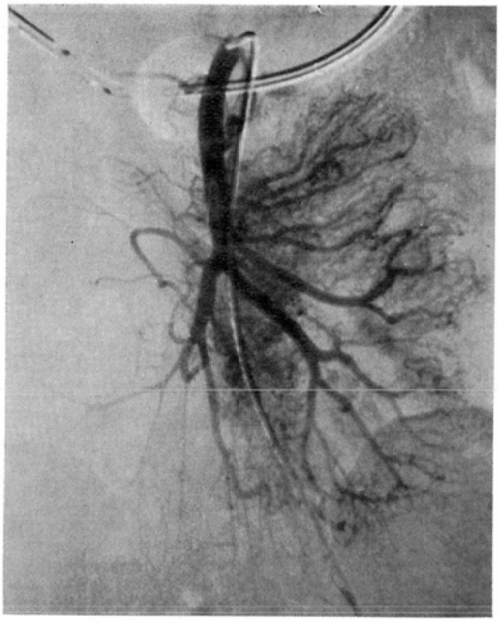
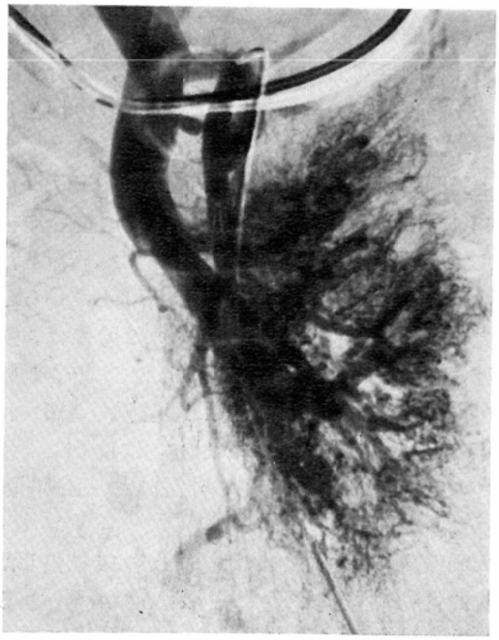
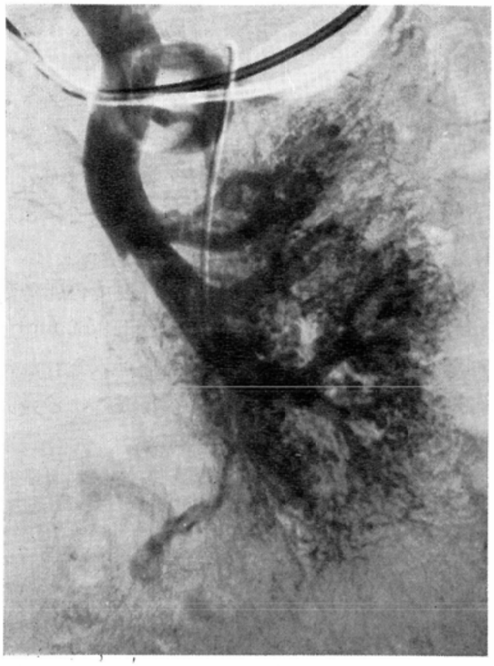


Fig. 2. Superior mesenteric angiogram.
a) Arterial phase. (after 1.7 seconds) Dilated superior mesenteric artery and its branches are shown. Slipped Blakemore tube is located in the stomach.



b) Arterial phase. (after 4 seconds) There is simultaneous visualization of the superior mesenteric artery and superior mesenteric vein during the arterial phase. The fistulas are located at the jejunal and ileal branches with multiple diffuse arteriovenous malformations.



c) Venous phase. (after 5.3 seconds) Filling of dilated superior mesenteric vein with arteriovenous malformations are shown.

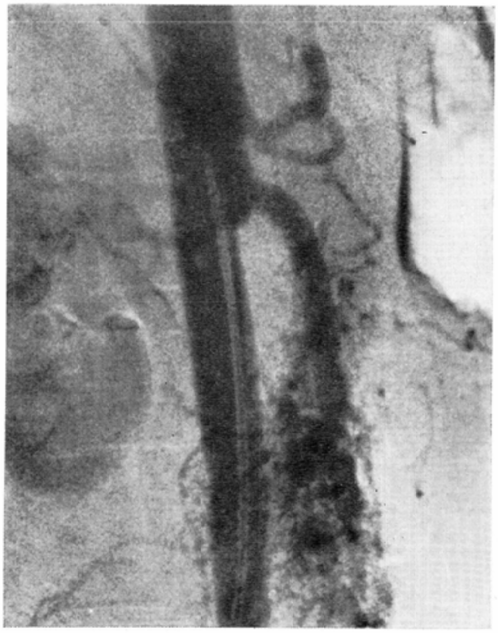


Fig. 3. Lateral aortogram, arterial phase. Abdominal aorta markedly diminishes its diameter after branching superior mesenteric artery which is dilated.

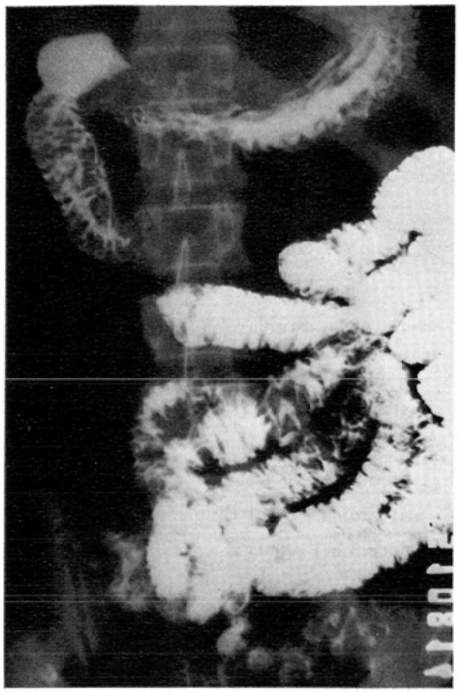


Fig. 4. Follow up study of intestine with barium. There is stacked coin appearance at the jejunum.

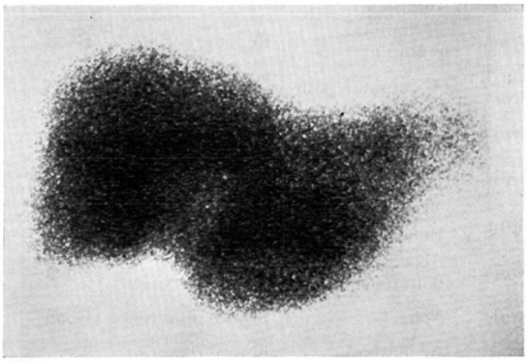


Fig. 5. Liver scintigram. Liver scintigram with ^{99m}Tc-phytate shows enlargement of the left lobe, suggesting liver cirrhosis.

phytate 5 mCi 静注後の肝シンチグラム正面像(Fig. 5)では，左葉の腫大がみられ，肝硬変のパターンをしている．

以上の検査所見より，多発性上腸間膜動静脈奇形による門脈高血圧及び食道静脈瘤破裂と診断した．

Fig. 6. Superior mesentericangiography using mammographic films during laparotomy.Dilated ileal branches are shown.

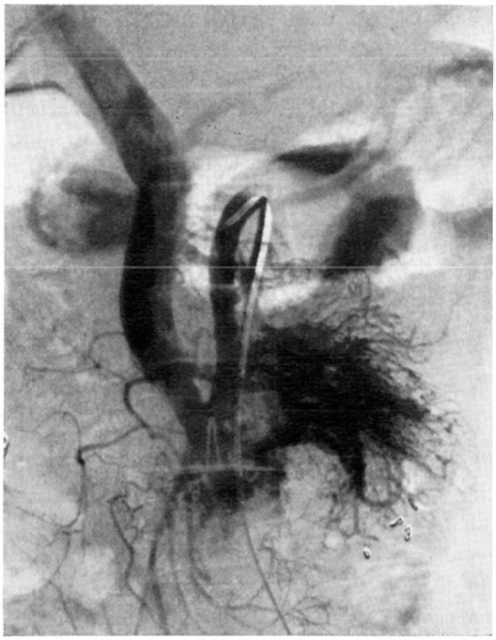


Fig. 7. Superior mesenteric angiography, one week following surgical repair, arterial phase. Arteriovenous malformations were left in the jejunum causing simultaneous visualization of the superior mesenteric artery and superior mesenteric vein.

臨床経過及び手術所見

Blakemore tube を挿入するも，圧を下げると吐血がおこる状態であつた．8月中旬より腹水が出現し，著明に増加してきた．患者は左季肋部痛

を訴え続けていたが，下痢はなかつた．この間，各専門家と相談したが，今まで未報告の症例で，対応策はなかつた．8月30日に消化器外科に転科し緊急開腹手術を行なつた．4,800ml の腹水を排除すると腸間膜は約4cm に肥厚し，中央部が黄白色に変性していた．なお，術前に Seldinger 法によりカテーテルを，上腸間膜動脈に留置し，術中上腸間膜動脈造影を行ない，回腸の血管拡張した部位を撮影し，切除境界部位を決定した．フイルムは，清潔のマンモグラフイ用を用いた．(Fig. 6) 回腸末端より80cm の部位から口側にむかつて小腸を計測し，238cm を切除した．口側端には，動静脈奇形の残存が充分疑われたが，止むをえず，空腸の一部を残した．又，その後，肥厚した

Table 2. Reported Cases of Mesenteric Arteriovenous Fistulas

Reporter	Year	Location	Etiology	Signs	Symptoms	Treatment	Result
Movitz[1]	1960	Ileal branch	Small bowel resection	Bruit	Abdominal pain Diarrhea	Fistulectomy	Good
Munnell[11]	1960	Middle colic branch	Small bowel resection	Bruit Thrill	Abdominal pain Diarrhea	Bowel resection	Good
Reams[12]	1960	Middle colic branch	Gastrectomy	Bruit Thrill	Abdominal pain	Fistulectomy	Good
Rabham[13]	1962	Main trunk	Gunshot	Bruit Ascites	Abdominal pain Diarrhea	Exploration	Died
Durham[14]	1962	Right colic branch	Small bowel resection	Bruit	Buzzing in abdomen	Excision	Good
Summer[15]	1963	Main trunk	Gunshot	Bruit Thrill	None	Fistula closed	Good
Taylor[6]	1965	Ileocolic branch	Small bowel resection	Bruit	Fatigue Dyspnea	Fistulectomy	Good
Currin[16]	1966	Ileocolic branch	Resection of ascending colon	Bruit	Abdominal cramping	Fistulectomy	Good
Grafe[17]	1966	Ileal branch	Small bowel resection	Bruit Thrill	Abdominal pain Diarrhea	Fistulectomy	Good
Spellman[18]	1967	Main trunk	Gunshot	Bruit	Abdominal cramping	Reconstruction	Good
Ganshirt[19]	1967	Right colic branch	Hemicolectomy	Thrill Bruit	Abdominal pain	Ligation	Good
Varner[20]	1969	Jejunal branch	Gunshot	Bruit	Abdominal cramping	Ligation Division	Good
Water[21]	1969	Ileal branch	Small bowel resection	Bruit	Abdominal cramping	Fistulectomy	Good
Forbes[22]	1969	Jejunal branch	Gunshot	Bruit	Abdominal pain Diarrhea	Excision	Good
Smith[23]	1970	Jejunal branch	Exploratory laparotomy	Bruit	Abdominal cramping	Fistulectomy Bowel resection	Good
Tanenbaum[9]	1970	Ileal branch	Stab wound	Bruit	None	Bowel resection	Good
Anderson[2]	1971	Jejunal branch	Congenital	None	Abdominal cramping	Bowel resection Fistulectomy	Good
Metzger[8]	1972	Ileocolic branch	Small bowel resection	Bruit	Diarrhea Rectal bleeding	Bowel and cecum resection	Good
Brunner[7]	1972	Main trunk	Gunshot	Thrill Bruit	Fever	Bowel resection	Good
Bole[10]	1973	Main trunk	Gunshot	Bruit	None	Bowel resection Fistulectomy	Good
Nicholas[4]	1974	Main trunk	Gunshot	Bruit Thrill	Abdominal cramping Diarrhea	—	Died
Paloyan[5]	1974	Main trunk	Small bowel resection	Bruit	Abdominal pain	Fistulectomy	Good
Furukawa[3]	1976	Jejunal branch Ileal branch	Congenital	None	Anemia Chest pain	Bowel resection	Died
Matsumoto (present case)	1977	Jejunal branch Ileal branch	Congenital	None	Abdominal pain Ascites	Bowel resection Fistulectomy	Died

腸間膜にも動脈造影を行ない多くのshuntを確認した．腸間膜をできるだけ切除したが，その変化は腸間膜根部にまで達し完全に切除できなかつた．

切除した腸間膜の病理組織標本では，太く拡張した静脈が多数みられ，血栓が形成され一部再疎通もみられた．なお，この時点では病理学的に動静脈瘻を確認できなかつた．

手術後一週間後の上腸間膜動脈造影では，動静脈奇形が多数残存し，動脈相早期よりshuntの形成がみられる（Fig. 7）．

患者は，その後も吐血が続き，第一回目の手術後約2カ月で死亡した．

考　察

上腸間膜動静脈奇形は，まれな疾患で現在まで23例の文献的報告があるにすぎない（Table 2）．

その原因別にみるとTable 3のごとく銃創によるもの8例，小腸切除術によるもの8例が大多数

Table 3. Etiology

Etiology	Cases
gunshot	8
small bowel resection	8
congenital	2
stab wound	1
colectomy	2
exploratory laparotomy	1
gastrectomy	1
Total	23

をしめ，胃切除術によるもの1例，試験的開腹術によるもの1例，大腸切除術によるもの2例，刺傷によるもの1例である．先天性のものは，1972年Anderson[2]によりはじめて報告されている．communicating vascular channelsの多発性と手術や外傷の既往がなかつたために先天性によるものと考えられた．1976年，古川[3]により，やはり先天性と考えられた1例が報告されている．我々の例では，入院の2週間前に，背部に鉄材があたり腹部も打撲しているが，非常に広範に動静脈奇形が多発していることより先天性に存在した動静脈奇形に外傷が加わり，門脈高血圧及びそれに付随する症状がおこつたものと考えられた．場合によつては肝硬変症も一部先行寄与していたかも知れない．動静脈奇形は，空腸，回腸に多発しており，その範囲の広さは今までの報告に例をみない．腸間膜動静脈奇形の徴候と症状には共通のものがみられる．徴候として腹部雑音，震音触診が大多数の例で報告されているが我々の例ではなかつた．症状として腹部疝痛，水様便，発熱，白血球増多，門脈圧亢進症（食道静脈瘤，腹水，脾腫）が一般にみられる．Nicholas[4]は上腸間膜動静脈奇形が生みだす随判症状の血行動態的な変化について考察を加えている．腹部疝痛は，動静脈奇形の遠側の腸管乏血の結果と考えられる[4)5)6)]．門脈圧亢進症は毛細血管圧を増大し腹水の原因となる．腸管乏血による毛細管浸透圧の増加と門脈圧亢進症による毛細管圧上昇とにより小腸の浮腫がおこる．水様便はその結果であり腸管内腔へ液体が漏出することによるという[4)]．

末梢血管の動静脈吻合は心不全に発展する心肥大をおこすが，上腸間膜動静脈奇形の患者では，心は spare されるので心肥大は普通はみられない．この理由は肝毛細管床の damping 効果と門脈血行の上昇に応じて肝動脈血流を下げる門脈系の自動調節機構による[5)7)8)9)]．しかし，Brunner[7)]は，著明に上昇した心拍出量を示した上腸間膜動静脈奇形を報告している．又，Paloyan[5)]は，心拍出量の上昇の例を報告し，それは吻合部をとじるとなおつたといつている．

我々の例では，手術中に出血多量で，止血にとまどつたために門脈圧の測定は行なえなかつた

Table 4. Location of Superior Mesenteric Artery Involved

Location	Cases
main trunk	7
jejunal branch	4
ileal branch	4
jejunal and ileal branch	1
ileocolic branch	3
middle colic branch	2
right colic branch	2
Total	23

が，心肥大はみられなかつた．

上腸管膜動静脈奇形を部位別にみると Table 4 の如く，主部7例，空腸枝4例，回腸枝4例，回結腸枝3例，中結腸枝2例，右結腸枝2例，空腸枝，回腸枝1例である．それらの大多数は単発性のものである．

治療は，動静脈奇形の部位により決定される．もしそれが，上腸間膜動脈の末梢に位置しておれば，血管の結紮が行なわれる．しかし主動脈又は大きな枝が，おかされていれば，動静脈奇形といっしょに，動脈が切除され，動脈が端々吻合される．我々の例では，腸間膜動静脈奇形は，回腸枝，空腸枝に多発しており，完全に切除はできず術後約2カ月で死亡した．

まとめ

吐血を主訴として来院した患者に，腹部血管造影を行ない広範囲にわたる多発性上腸間膜動静脈奇形の1例を経験したので報告した．現在まで，23例の報告があり，臨床症状として，腹部疝痛，下痢，門脈圧亢進症（腹水，静脈瘤）が普通みられる．原因は医原性又は外傷性によるものが大多数であり，先天性のものは2例の報告をみるにすぎない．本例では先天性としては3例目と思われるが，先天性に存在した上腸間膜動静脈奇形に外傷が加わり吐血で発症した特異な例と考えられた．又本例では動静脈奇形が空腸枝，回腸枝に多発しており，これほど広範に多発した報告例はなかつた．治療としては，吻合部切除，結紮，腸間膜切除など外科的処置にゆだねるところが多い．

なお，手術所見，病理所見については，別に報告される予定である．

（本例の要旨は第275回，日本医学放射線学会関東地方会において発表した）．

References

1) Movitz, D. and Finne, B.: Postoperative arteriovenous aneurysm in mesentery after small bowel resection. J.A.M.A. 173: 42—44, 1960
2) Anderson, R.D., Liebeskind, A. and Lowman, R.M.: Arteriovenous fistula of the mesentery. American J. of Gastroenterology 57: 453—458, 1972
3) 古川勇一，大泉幸雄，山口信夫，田口光雄：消化管出血の原因となつた小腸動静脈奇形の一例．日医放会誌：36, 686, 1976
4) Nicholas, G.G. and Lane, M.F.: Traumatic superior mesenteric artery superior mesenteric vein fistula. J. of Trauma. 14: 344—347, 1974
5) Paloyan, D., Dollins, P.A. and Washburn, F.P.: Superior mesenteric arteriovenous fistula. American Surgeon. 40: 481—484, 1974
6) Taylor, R.M.R., Douglas, A.P., Hacking, P.M. and Walder, F.C.: Traumatic fistula between a main branch of the superior mesenteric artery and vein. Amer. J. Med. 38: 641—645, 1965
7) Brunner, S.H. and Stanley, R.S.: Superior mesenteric arteriovenous fistula. Report of case with increased systemic flow. J.A.M.A. 223: 316—318, 1972
8) Metzger, D.G., Nebraska, O., Hamilton, R.F. and Nebraska, L.: Mesenteric arteriovenous fistula. Amer. J. Surg. 124: 767—769, 1972
9) Tanenbaum, B., Pochaczevsky, R., Levowitz, B.S. and Richter, R.M.: Traumatic mesenteric arteriovenous fistula. Brit. J. Radiol. 43: 726—729, 1970
10) Bole, P., Andronaco, J.T. and Purdy, R.: Superior mesenteric arteriovenous fistula secondary to a gunshot wound. J. of Cardiovascular Surg. 14: 456—459, 1973
11) Munnel, E.R., Mota, C.R. and Thompson, W.B.: Iatrogenic arteriovenous fistula. Report of a case involving the superior mesenteric vessels. Amer. Surg. 26: 738—743, 1960
12) Reams, G.B.: A middle colic arteriovenous fistula developing as a postgastrectomy complication. Arch. Surg. 81: 757—760, 1960
13) Rabham, N.B., Guillebeau, J.G. and Brachney, E.L.: Arteriovenous fistula of the superior mesenteric vessels after a gunshot wound. New Eng. J. Med. 266: 603—605, 1962
14) Durham, M.W., Rolnett, A.H., Harper, H.P. and Yehel, R.: Arteriovenous fistula of the mesenteric vessels. West. J. Surg. 70: 9—11, 1962
15) Summer, R.G., Kistler, W.F. and Mclntosh, H.D.: Recognition and surgical repair of superior mesenteric arteriovenous fistula. Circulation 27: 943—950, 1963
16) Currin, J.F. and Metcalf, B.H.: Postcolectomy arteriovenous fistula. American J. of Gastroenterology 46: 352—355, 1966
17) Grafe, W.R. and Steinberg, I.: Superior mesenteric arteriovenous fistula following small

bowel resection. Gastroenterology 51: 231—235, 1966

18) Spellman, M.S., Mandal, A., Freeman, H.P. and Massumi, R.A.: Successful repair of an arteriovenous fistula between the superior mesenteric vessels secondary to a gunshot wound. Ann. Surg. 196: 458—463, 1967.

19) Gansh rt, L.W., Weaver, F.E. and Olander, G.A.: Mesenteric arteriovenous fistula: Review of the literature and a report of a case. Vasc. Surg. 1: 82—85, 1967

20) Varner, J.E. and Oliver, R.I.: Superior mesenteric arteriovenous fistula. Ann. Surg. 170: 862—865, 1969

21) Warter, J., Kieny, R., Gillet, B., et al.: Fistule artérioveineuse mésenterique aprés résection portielle de I' intestin Grele. Ann. Med. Interne. 120: 185—191, 1969

22) Forbes, H.W., Thompson, C.Q. and Smith, J.W.: Mesenteric arteriovenous fistula after a gunshot wound. J. Trauma. 9: 806—811, 1969

23) Smith, R.B. and Stone, H.: Traumatic arteriovenous fistulas involving the portal venous system (case III). Amer. Surg. 119: 570—573, 1970