

症 例

外科的切除を要した下腸間膜動静脈奇形による難治性虚血性腸炎の1例

福島県立医科大学医学部消化管外科学講座¹⁾, 同 病理病態診断学講座²⁾

八 子 博 貴¹⁾ 長谷川 誠¹⁾ 門 馬 智 之¹⁾

川 名 聡²⁾ 橋 本 優 子²⁾ 河 野 浩 二¹⁾

虚血性腸炎は血管側因子（動脈硬化，血栓等）と腸管側因子（便秘，下痢による腸管内圧上昇）が相乗的に作用し，腸管の血流障害を引き起こす疾患であり，通常は保存的治療で改善が見られる．今回，下腸間膜動静脈奇形が原因で難治性の虚血性大腸炎を発症し，偶発的にS状結腸癌を認め外科的治療を要した1例を経験した．症例は66歳の男性．継続する下痢・腹痛を主訴に受診し，虚血性腸炎の診断で保存的加療を行った．改善が乏しく，CTと血管造影検査で下腸間膜動静脈奇形を認めた．血管内治療は腸管虚血の悪化が懸念された．下部消化管内視鏡検査で脾彎曲結腸から直腸にかけて浮腫が残存し，S状結腸に早期癌を認めた．以上から下腸間膜動静脈奇形による虚血性腸炎，S状結腸癌（cT1bN0M0 cStage I）の診断で開腹Hartmann手術，D2郭清を施行した．術後は症状の再燃なく経過しており，難治性虚血性腸炎の原因として下腸間膜動静脈奇形を考慮し，外科的根治術を検討する重要性が示唆された．

索引用語：下腸間膜動静脈奇形，虚血性腸炎，大腸癌

緒 言

虚血性腸炎は腸管の血流障害に起因し，急性の腹痛・下痢・下血などの症状を呈する疾患である．この疾患は多くの場合，動脈硬化や血栓などの血管側因子と便秘や下痢による腸管内圧の上昇などの腸管側因子が相乗的に作用することにより発症し，通常は保存的治療で改善が見られる¹⁾．今回，下腸間膜動脈（inferior mesenteric artery；IMA）領域の動静脈奇形（arterio-venous malformation；AVM）が原因で難治性の虚血性大腸炎を発症し，偶発的にS状結腸癌を認め，外科的治療を要した1例を経験した．

症 例

患者：66歳，男性．

主訴：下腹部痛，下痢．

既往歴：一過性脳虚血発作，左中大脳動脈狭窄症，右内頸動脈狭窄症，慢性腎臓病，高血圧，高脂血症，耐糖能異常．

内服歴：クロピドグレル，シロスタゾール，他．

現病歴：2023年10月に1週間継続する下腹部痛，下痢を主訴に前医を受診．脾彎曲結腸から直腸にかけての虚血性腸炎の診断で入院となった．絶食および抗菌薬による治療が行われたが炎症の改善が乏しく，CTで下腸間膜動静脈瘻が疑われ，精査加療目的に当院へ紹介，転院となった．

入院時現症：身長168cm，体重70.5kg，体温37.5℃．腹部は軟で圧痛や腹膜刺激症状は見られなかったが，下痢は継続していた．

血液・生化学検査所見：白血球数9,300/mm³，CRP 7.17mg/dLと上昇を認めた．Cre 2.17mg/dL，Dダイマー20.3μg/mLと高値を示した．

下部消化管内視鏡検査：脾彎曲から直腸にかけて浮腫状変化と生検で陰窩の立ち枯れ壊死が確認され，虚血性腸炎が考えられた．また，AV20cmのS状結腸に15mm大の0-IIc病変が認められ，生検でtub1と診断された（Fig. 1）．

腹部CT：脾彎曲結腸から直腸Rbにかけて壁の造影効果不良と，周囲に毛羽立ちや液体貯留を認めた．動脈相でIMA領域および脾彎曲結腸周囲の静脈が早期に濃染し，拡張した異常血管の集簇を認めAVMが疑われた（Fig. 2）．S状結腸に腫瘍性病変は描出され

2025年1月30日受付 2025年2月14日採用

〈所属施設住所〉

〒960-1295 福島市光が丘1

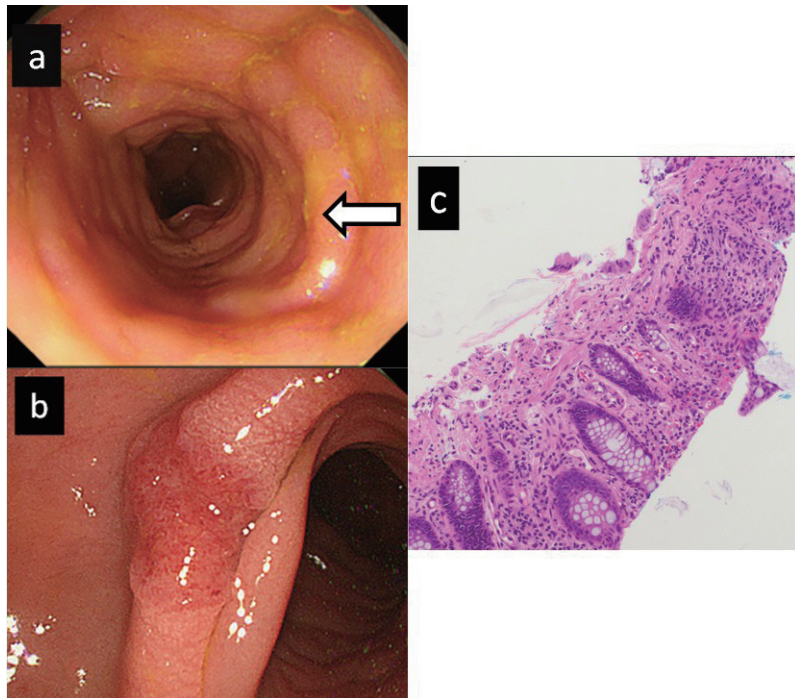


Fig. 1 a, b 下部消化管内視鏡検査：脾彎曲結腸～直腸まで浮腫変化を認めた。矢印を生検（a）。S状結腸に15mm大の発赤を伴う0-IIc病変を認める。深達度はSMと診断された（b）。c 生検部の病理組織学的所見（H.E.染色，×100）：陰窩の立ち枯れ壊死所見を認め、虚血性腸炎の所見として矛盾しない。

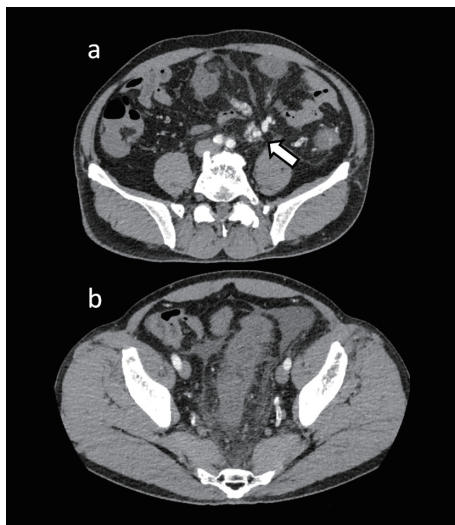


Fig. 2 腹部造影CT：a IMA近傍に早期濃染される拡張した静脈を認める（矢印）。b 直腸壁の造影効果が不良であり、周囲毛羽立ちと液体貯留を認める。

ず、明らかなリンパ節転移や遠隔転移は認めなかった。以上より、S状結腸癌cT1bN0M0 cStage Iと診断された。

血管造影検査：IMAを選択し造影すると、上直腸動脈中枢側/第1S状結腸動脈から多数のnidusと拡張した流出静脈が早期に描出され、AVMと診断された。上直腸動脈末梢側は早期に描出されず、AVMによる盗血現象が示唆された。腹腔動脈を選択造影すると中結腸動脈が腹腔動脈から起始し、脾彎曲部にもAVMが認められた（Fig. 3）。

AVMによる虚血性腸炎に対して血管内治療（interventional radiology；IVR）も検討されたが、隣接する2領域の動脈塞栓は壊死の危険が高まること、また偶発的にS状結腸癌を認めることから手術を選択した。高度の腸管浮腫が予想され、縫合不全リスクが高いためHartmann手術を予定した。

手術所見：腹腔鏡下で観察すると、脾彎曲結腸から直腸壁の浮腫変化と間膜の著明な肥厚・硬化を認め、腸管の授動や剥離層の同定が困難であり、開腹手術に

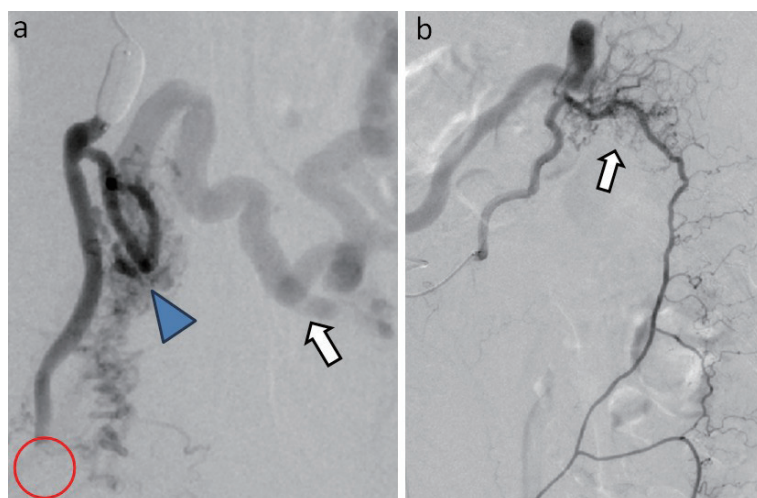


Fig. 3 血管造影検査：a 下腸間膜動脈を選択的に造影した。上直腸動脈、第1 S状結腸動脈からnidus（矢頭）と拡張した流出静脈（矢印）が造影される。上直腸動脈の末梢側は早期に造影されなかった（丸印）。b 腹腔動脈を選択的に造影した。腹腔動脈から中結腸動脈が分岐。脾彎曲結腸周囲にnidus認める（矢印）。

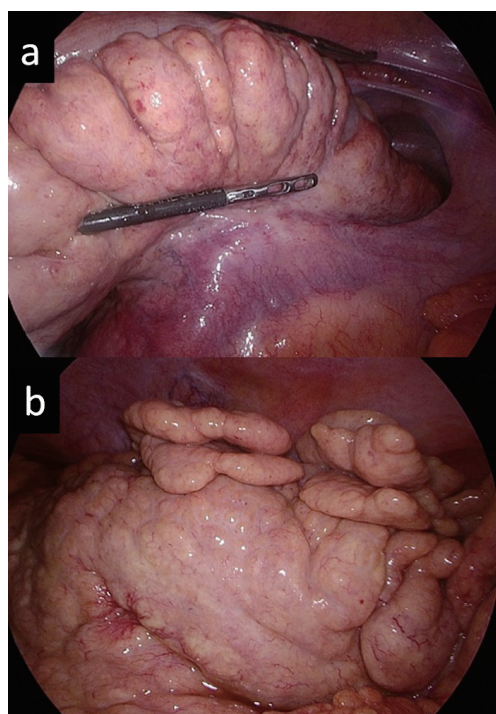


Fig. 4 a 直腸壁、間膜の著明な肥厚を認めた。b 横行結腸～下行結腸間膜も同様の腸間膜肥厚、硬化を認め、後腹膜との剥離層同定に難渋し、開腹移行した。

移行した。直腸Rbの浮腫、間膜肥厚・硬化は下行結腸から直腸Raと比較して軽度であり、切離可能と判断した。S状結腸癌からの距離も十分確保されていることを術中に内視鏡で確認し、腹膜翻転部直下の直腸Rbで切離した。口側は浮腫が強い脾彎曲横行結腸まで切離した。AVMを含むD2郭清のラインでIMAと腸間膜を切離した。直腸切離断端の壁の浮腫と間膜の肥厚・硬化は軽度に見られ、また残存横行結腸断端と直腸Rbの吻合は距離の観点からも困難と判断し、予定通り横行結腸単孔式人工肛門を造設した。出血量は940ml、手術時間は393分であった（Fig. 4）。

病理組織学的所見：間膜内の一部で、内腔が拡張した径が大きい動静脈が密集している領域を認めた。これらの動静脈には内膜肥厚を認め、静脈の中膜に平滑筋線維減少や膠原線維増生を認めた。圧負荷による静脈壁の変性所見と考えられたことから、nidusそのものを確認することはできなかったものの、近傍での動静脈瘻の存在が推定された。切除腸管に関しては粘膜下層や漿膜下層の線維増生や浮腫、炎症細胞浸潤を認め、慢性虚血変化としても矛盾しない所見であった。また、S状結腸癌、type0-IIc、7×6 mm、tub1、pTis（M）、N0と診断された（Fig. 5）。

術後経過：Clavien-Dindo分類Grade IIの遺残膿瘍、麻痺性イレウスを発症したが、抗菌薬治療で改善しPOD19で退院となった。

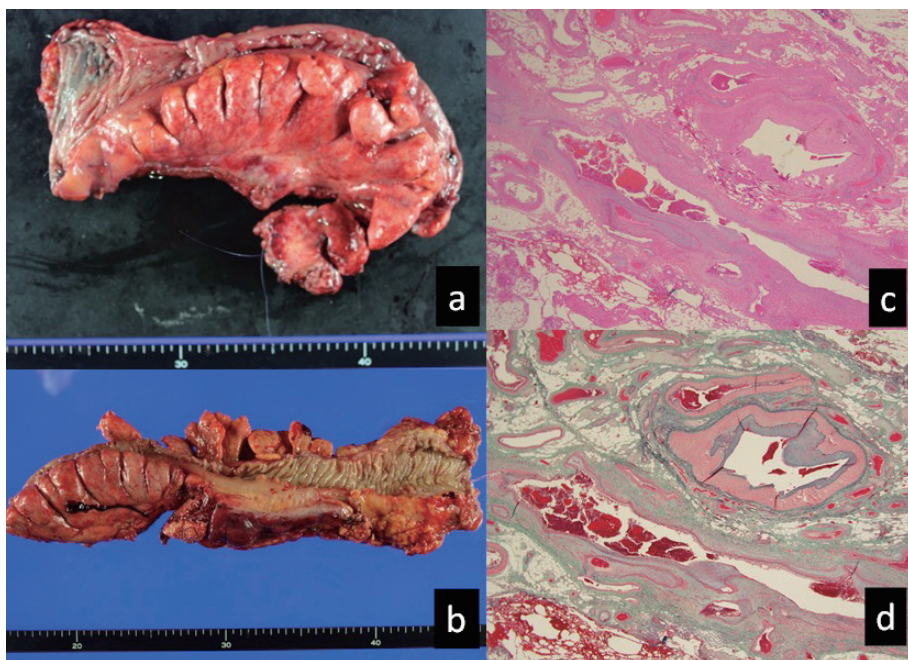


Fig. 5 a S状結腸～直腸. b 脾彎曲横行結腸～S状結腸. c, d 病理組織学的所見 c 間膜内に腔拡張、壁肥厚を示す動静脈を認めた (H.E.染色, ×125). d 静脈の中膜に平滑筋線維の減少および膠原線維の増生と、内膜に部分的な線維性肥厚を認めた (Elastica-Masson染色, ×125).

考 察

自験例においてIMA領域のAVMが難治性虚血性腸炎の原因となること、並びに外科的切除が有効な治療法であることが示唆された。

AVMによる腸管虚血は、腸間膜内のnidusで血流が動脈から静脈に短絡することにより、臓器血流が減少する盗血現象が原因とされる。この現象により静脈圧が上昇し、臓器がうっ血して、虚血がさらに増悪する²⁾。消化管AVMの発生部位としては、腹腔動脈領域が75%を占め、内臓としては肝動脈領域45%、脾動脈領域30%とされる³⁾。IMA領域のAVMの報告は少なく、医学中央雑誌において「動静脈奇形」「下腸間膜動脈」で検索したところ1998年1月から2024年12月までの期間に25例（会議録を除く）報告されていた。そのうち、IMA領域のAVMに関する報告は22例あり、AVMによる虚血性腸炎を呈した症例は9例に過ぎなかった（Table 1）^{4)～25)}。一般に見られる虚血性腸炎は多くが絶食と補液による保存的加療で改善されるが¹⁾、9例（77.8%）で観血的治療を要しており^{11)18)～23)}、AVMによる虚血性腸炎は難治性であることが示唆される。

治療は腸間膜内AVMに対するIVRや外科的切除が

挙げられる。虚血性腸炎で観血的処置が必要となった8例のうち、3例は手術を先行、5例はIVRが施行されている。IVRが施行された5例のうち3例（60%）はIVR後に症状が増悪、再燃し腸管切除が必要となっている。AVMを介する血流が多い症例や流入動脈が複数ある場合、また動静脈シャント部分の完全な塞栓が困難な場合、静脈拡張により塞栓物質が移動する可能性がある場合には腸管虚血や症状再燃のリスクが高いと報告されている¹¹⁾²⁴⁾。横山ら²¹⁾の報告では自験例と同様にS状結腸動脈と上直腸動脈から流入するAVMを認めていたが、IVR施行後4カ月で狭窄型虚血性腸炎を発症し腸管切除が行われており、自験例でも、仮にIVRを考慮した場合、IVRによって虚血性腸炎が増悪した可能性も示唆される。検索しうる限りでは手術症例で症状再燃の報告は見られなかった。手術症例では広範囲の腸管切除と人工肛門造設を要した報告が多い^{18)20)～22)}。腸管膜の肥厚や腸管周囲の炎症の影響で層の同定が困難となり、自験例のように開腹手術が必要となることもある。人工肛門造設を回避し患者の負担を軽減するためにIVRが適応となる症例を適切に選択する必要がある。今後AVMの形態に応じた治療方

Table 1 本邦における下腸間膜動静脈奇形の報告例

| No. | 報告年 | 著者 | 性別/年齢 | 腹部手術歴 | 主訴 | 病態 | 治療 | 流入動脈 | 流出静脈 | 人工肛門 |
|-----|------|--------------------------|-------|-------|-------|----------------|----------------|---------|------------|------|
| 1 | 1998 | 新里 ⁴⁾ | 66/男 | なし | 血尿 | 尿道出血 | 血管内治療 | IMA IIA | IIV IVC | / |
| 2 | 1998 | Hayakawa ⁵⁾ | 38/男 | なし | 血便 | 直腸出血 | 腸管切除 | SRA | 詳細不明 | なし |
| 3 | 2001 | 黒木 ⁶⁾ | 68/男 | なし | 腹痛 | 大腸静脈瘤 | 経過観察 | SRA | MCV | / |
| 4 | 2001 | 森 ⁷⁾ | 58/男 | なし | しぶり腹 | 虚血性腸炎 | 保存的加療 | SRA | IMV | / |
| 5 | 2001 | 西脇 ⁸⁾ | 77/女 | なし | 腹部膨満 | 門脈圧亢進 | 腸管切除 | SA SRA | IMV | なし |
| 6 | 2004 | 根岸 ⁹⁾ | 25/男 | なし | 左陰囊痛 | 腹腔内腫瘍 | 血管内治療 | IMA IIA | It IIV | / |
| 7 | 2005 | 岩寄 ¹⁰⁾ | 74/男 | あり | なし | 門脈圧亢進 食道静脈瘤 | 瘻孔閉鎖術 | IMA | IMV | なし |
| 8 | 2007 | 松井 ¹¹⁾ | 64/男 | あり | 粘液便 | 虚血性腸炎 | 血管内治療 | SRA | IMV | / |
| 9 | 2009 | 藤井 ¹²⁾ | 69/男 | あり | 腹部膨満 | 門脈圧亢進 | 血管内治療 | SRA IIA | IMV | / |
| 10 | 2012 | 加茂 ¹³⁾ | 70代/男 | なし | 下痢 腹痛 | 虚血性腸炎 | 保存的加療 | 詳細不明 | 詳細不明 | / |
| 11 | 2012 | 藤澤 ¹⁴⁾ | 64/女 | なし | 血便 | 消化管出血 | 血管内治療 →腸管切除 | LCA MCA | MCV | なし |
| 12 | 2012 | Takahashi ¹⁵⁾ | 78/男 | なし | 血便 | 門脈圧亢進 | 腸管切除 | IMA | IMV | なし |
| 13 | 2013 | 古角 ¹⁶⁾ | 76/男 | なし | 血便 | 消化管出血 | 腸管切除 | SA | 詳細不明 | なし |
| 14 | 2014 | 松浦 ¹⁷⁾ | 68/女 | なし | 血便 | 消化管出血 | 血管内治療 | SRA | SRV | / |
| 15 | 2014 | 佐藤 ¹⁸⁾ | 69/男 | なし | 下痢 | 虚血性腸炎 | 血管内治療 →腸管切除 | IMA | IMV | あり |
| 16 | 2014 | Ushigome ¹⁹⁾ | 60代/男 | あり | 下痢 | 虚血性腸炎 | 瘻孔切離術 | SRA | IMV | なし |
| 17 | 2015 | 大原 ²⁰⁾ | 74/男 | なし | 下痢 血便 | 虚血性腸炎 | 血管内治療 →腸管切除 | SA LCA | MCV PV LGV | あり |
| 18 | 2018 | 横山 ²¹⁾ | 83/女 | なし | 腹痛 | 虚血性腸炎 | 血管内治療 →腸管切除 | SA SRA | 記載なし | あり |
| 19 | 2019 | 友松 ²²⁾ | 65/男 | あり | 下痢 | 虚血性腸炎 | 腸管切除 | IMA | IMV | あり |
| 20 | 2020 | 増田 ²³⁾ | 74/男 | あり | 下痢 腹痛 | 虚血性腸炎 | 血管内治療 | 詳細不明 | 詳細不明 | / |
| 21 | 2023 | Saito ²⁴⁾ | 50/男 | なし | 吐血 | 門脈圧亢進 | 血管内治療 | IMA | IMV | / |
| 22 | 2023 | Furukawa ²⁵⁾ | 62/男 | なし | 排便困難 | 直腸癌 | 腸管切除 | IMA | IMV IVC | なし |
| 23 | 2025 | 自験例 | 66/男 | なし | 下痢 腹痛 | 虚血性腸炎 | 腸管切除 | SA SRA | IMV | あり |

MCA : middle colic artery (中結腸動脈), MCV : middle colic vein (中結腸静脈), SA : sigmoid colon artery (S状結腸動脈), SRA : superior rectal artery (中直腸動脈), SRV : superior rectal vein (中直腸静脈), IIA : internal iliac artery (内腸骨動脈), IIV : internal iliac vein (内腸骨静脈), IMA : inferior mesenteric artery (下腸間膜動脈), IMV : inferior mesenteric vein (下腸間膜静脈).

法に関する更なる症例の集積が必要である.

結 語

難治性虚血性腸炎の原因として下腸間膜動静脈奇形を考慮し, 外科的根治術を検討する重要性が示唆された.

利益相反 : なし

文 献

- 1) 松橋信行 : 虚血性大腸炎. 中島 淳/編, 最新ガ

イドラインに基づく消化器疾患診療指針 2023-'24, 第1版, 総合医学社, 東京, 2023, p97-99

- 2) Metcalf DR, Nivatvongs S, Andrews JC, et al : Ischemic colitis : an unusual case of inferior mesenteric arterio-venous fistula causing venous hypertension. Report of a case. Dis Colon Rectum 2008 ; 51 : 1422-1424
- 3) Tütkevatan A, Ozdemir Akdur P, Akdoğan M, et al : Inferior mesenteric arteriovenous fistula

- with ischemic colitis : multidetector computed tomographic angiography for diagnosis. *Turk J Gastroenterol* 2009 ; 20 : 67-70
- 4) 新里仁哲, 澤田 敏, 谷川 昇他 : 骨盤内動静脈奇形に対して動脈塞栓術を施行した 1 例. *琉球医学会誌* 1998 ; 18 : 57-61
 - 5) Hayakawa H, Kusagawa M, Takahashi H, et al : Arteriovenous malformation of the rectum : report of a case. *Surg Today* 1998 ; 28 : 1182-1187
 - 6) 黒木聖子, 北川晋二, 中島力哉他 : 左側結腸静脈瘤の 1 例. *日本医放会誌* 2001 ; 61 : 42-44
 - 7) 森 昭裕, 奥村昇司, 大橋憲嗣他 : 上直腸動脈静脈瘻が確認された虚血性腸炎の 1 例. *Gastroenterol Endosc* 2001 ; 43 : 177-181
 - 8) 西脇 学, 住本洋之, 蘆田 寛他 : 下腸間膜動脈領域動静脈奇形による門脈圧亢進症の 1 例. *日消誌* 2001 ; 98 : 1083-1088
 - 9) 根岸孝仁, 加野雅子, 濱野克彦他 : 先天性骨盤内動静脈奇形の 1 例. *西日泌* 2004 ; 66 : 778-781
 - 10) 岩寄友視, 井上芳徳, 菅野範英他 : 医原性下腸間膜動静脈瘻の 1 治療例. *日血管外会誌* 2005 ; 14 : 597-600
 - 11) 松井あや, 岩井和浩, 川崎亮輔他 : 頻回の粘血便を主訴とし IVR が奏功した下腸間膜動静脈瘻の 1 例. *日消誌* 2007 ; 104 : 194-199
 - 12) 藤井理子, 木村 祐, 近藤千沙他 : 下腸間膜動脈領域の動静脈瘻により難治性腹水を呈し IVR 治療 (塞栓術) により治療した 1 例. *日門脈圧亢進症会誌* 2009 ; 15 : 246-252
 - 13) 加茂実武, 不破相勲, 石山光富他 : 下腸間膜動静脈瘻による虚血性腸炎を呈した 1 例. *臨放* 2012 ; 57 : 309-313
 - 14) 藤澤貴史, 西川真那, 上山成充他 : カプセル内視鏡を契機に診断された大腸動静脈奇形の 1 例. *Gastroenterol Endosc* 2012 ; 54 : 275-280
 - 15) Takahashi K, Kashida H, Kudo M : Hepatic nodules associated with an inferior mesenteric arteriovenous malformation. *Intern Med* 2012 ; 51 : 2753-2755
 - 16) 古角祐司郎, 石井正之, 東山 洋他 : 腹腔鏡手術を施行した腸間膜動静脈奇形を併存した S 状結腸憩室出血の 1 例. *日臨外会誌* 2013 ; 74 : 3386-3391
 - 17) 松浦源太, 向井伸一, 中村真也他 : 動脈塞栓術で根治が得られた直腸動静脈奇形の 1 例. *Gastroenterol Endosc* 2014 ; 56 : 49-55
 - 18) 佐藤博紀, 大村泰之, 河合 央他 : 遺伝性出血性末梢血管拡張症に合併した下腸間膜動静脈瘻に対して手術を施行した 1 例. *日消外会誌* 2014 ; 47 : 295-301
 - 19) Ushigome H, Hayakawa T, Morimoto M, et al : Rectal arteriovenous fistula resected laparoscopically after laparoscopic sigmoidectomy : a case report. *Asian J Endosc Surg* 2014 ; 7 : 56-59
 - 20) 大原信福, 森田俊治, 小森孝通他 : 虚血性大腸炎を呈した下腸間膜動静脈奇形の 1 例. *日消外会誌* 2015 ; 48 : 456-462
 - 21) 横山靖彦, 佐藤 崇, 山本佳生他 : 部分的塞栓術後に狭窄型虚血性大腸炎となった下腸間膜動静脈奇形の 1 例. *日臨外会誌* 2018 ; 79 : 2037-2042
 - 22) 友松宗史 : 横行結腸切除 15 カ月後に生じた下腸間膜動静脈瘻によりうつ血性大腸炎をきたした 1 例. *日本大腸肛門病会誌* 2019 ; 72 : 210-214
 - 23) 増田吉朗, 江口大樹, 持留直希他 : 下腸間膜動静脈瘻による虚血性大腸炎に対し interventional radiology が奏功した 1 例. *日内視鏡外会誌* 2020 ; 25 : 133-139
 - 24) Saito N, Inoue M, Ishida K, et al : A Case of Refractory Esophageal Varices Caused by an Inferior Mesenteric Arteriovenous Malformation with All Portal System Occlusion Successfully Treated via Transarterial Embolization. *Interv Radiol* 2023 ; 8 : 83-87
 - 25) Furukawa S, Hiraki M, Akashi M, et al : Laparoscopic surgery for rectal cancer with a coexisting Retzius shunt and inferior mesenteric arteriovenous malformation : A case report. *Asian J Endosc Surg* 2023 ; 16 : 761-765

A CASE OF REFRACTORY ISCHEMIC COLITIS ASSOCIATED WITH A MESENTERIC ARTERIOVENOUS MALFORMATION REQUIRING SURGICAL INTERVENTION

Hiroki YAGO¹⁾, Makoto HASEGAWA¹⁾, Tomoyuki MONMA¹⁾,
Satoshi KAWANA²⁾, Yuko HASHIMOTO²⁾ and Koji KONO¹⁾

Departments of Gastrointestinal Tract Surgery¹⁾ and Diagnostic Pathology²⁾, School of Medicine, Fukushima Medical University

Ischemic colitis is a condition caused by the combined effects of vascular factors and intestinal factors such as constipation or diarrhea, leading to impaired intestinal blood flow. It is usually managed with conservative treatment. In this report, a case of refractory ischemic colitis, caused by an inferior mesenteric arteriovenous malformation, and sigmoid colon cancer requiring surgical intervention, is presented. The patient was a 66-year-old man who presented with persistent diarrhea and abdominal pain. He was diagnosed with ischemic colitis and treated conservatively, but his condition did not improve. Contrast-enhanced computed tomography (CT) and angiography showed an inferior mesenteric arteriovenous malformation. Colonoscopy showed persistent edema from the splenic flexure to the rectum and sigmoid colon cancer. The final diagnosis was ischemic colitis due to inferior mesenteric arteriovenous malformation and sigmoid colon cancer (cT1bN0M0 cStage I). Open Hartmann surgery and D2 lymphadenectomy were performed, and there was no recurrence of symptoms postoperatively. This case suggests the importance of considering an inferior mesenteric arteriovenous malformation as a cause of refractory ischemic colitis and the need for surgical intervention.

Key words : inferior mesenteric arteriovenous malformation, ischemic colitis, colorectal cancer
