

〈症例報告〉

誘因なく腹腔内出血を来した下行結腸壁内血腫の1例

中藤 流以¹⁾, 畠 二郎¹⁾, 高田 珠子²⁾, 今村 祐志¹⁾, 東田 正陽³⁾
西村 広健⁴⁾, 八十川 和哉⁵⁾, 福嶋 真弥⁶⁾, 峯田 修明³⁾, 遠藤 俊治³⁾
上野 富雄³⁾, 眞部 紀明¹⁾, 梅垣 英次⁶⁾, 塩谷 昭子⁶⁾, 春間 賢⁷⁾

- 1) 川崎医科大学検査診断学 (内視鏡・超音波)
- 2) 三菱三原病院内科
- 3) 川崎医科大学消化器外科学,
- 4) 同 病理学,
- 5) 同 放射線診断学,
- 6) 同 消化管内科学,
- 7) 同 総合内科学2

抄録 結腸壁内血腫は稀な疾患で、全消化管壁内血腫の4.4%とされている。消化管壁内血腫の原因は外傷や抗血栓療法関連が多く、特異性は全体の1.1%とされている。医学中央雑誌では、結腸壁内血腫の本邦報告例は29例で、そのうち腹腔内出血と関連した報告は3例のみである。誘因なく腹腔内出血を来した下行結腸壁内血腫の1例を報告する。症例は70歳台男性、X月X日に明らかな誘因なく左側腹部痛を自覚した。様子をみたが改善なく翌日近医受診し、CTで下行結腸腫瘍と腹水貯留を認め当院搬送された。当院の腹部超音波検査では、下行結腸内腔を圧排する粘膜下腫瘍形態の境界明瞭な約70mmの腫瘍を認め、腸管壁と不可分であった。腫瘍内部は無エコー～高エコーが混在しており、color Doppler imagingで血流信号は認められず、腹腔内腫瘍の腸管浸潤を疑った。また、汎発性腹膜炎と腹腔内出血を認めた。造影CTで、下行結腸腸管壁に連続した筋肉よりもわずかに低吸収の造影効果のない腫瘍と、腫瘍近傍に紡錘状の動脈瘤が認められた。腹腔内出血と結腸壁内血腫の疑いの診断で、同日緊急外科的治療が行われた。術中所見は、腹腔内に鮮紅色の血性腹水が貯留し、下行結腸の壁内血腫漿膜側が穿破し、同部から出血していた。手術標本では、血腫は粘膜下層から漿膜下層に認められ、主体は漿膜下層であった。明らかな動脈硬化性変化は認められなかった。結腸壁内血腫は粘膜下腫瘍形態を呈し、保存的加療が原則とされるが、腸閉塞、腹腔内出血、出血性ショックを伴うこともあり、その場合は外科的治療が選択される。診断は造影CTが有用である。腹部超音波所見では、粘膜下腫瘍形態で、腫瘍内に血流信号が認められないことが鑑別の一助となる可能性がある。本症例では、病歴や画像所見および組織学的所見から、病態背景に分節性動脈中膜融解が存在していた可能性がある。

doi:10.11482/KMJ-J202147083 (令和3年4月30日受理)

キーワード：結腸壁内血腫, 消化管壁内血腫, 腹腔内出血, 分節性動脈中膜融解

別刷請求先

中藤 流以

〒701-0192 倉敷市松島577

川崎医科大学検査診断学 (内視鏡・超音波)

電話：086 (462) 1111

ファックス：086 (462) 7897

緒言

結腸壁内血腫は稀な疾患で、これまで本邦での報告例は29例で（医学中央雑誌で「結腸壁内血腫」「会議録を含む」で検索，2021年2月22日閲覧），そのうち腹腔内出血と関連した報告は3例のみである．結腸壁内血腫の原因は外傷が33.3～53.3%で最多とされ，続いて抗血栓治療関連が33～36%と続き，特発性結腸壁内血腫は消化管壁内血腫全体の1.1%と稀である¹⁻⁵⁾．今回，我々は明らかな誘因なく腹腔内出血を来した下行結腸壁内血腫の1例を経験したので報告する．

症例

症例：70歳台，男性

主訴：左側腹部痛

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

内服薬：なし

生活歴：喫煙20本/日×53年，飲酒習慣なし，アレルギーなし

現病歴：20XX年X月X日に特に誘因なく左側腹部痛が出現した．様子を見ていたが改善なく，翌日に近医受診し施行された腹部～骨盤CT検査で，下行結腸腫瘍と腹水貯留を認め同日当院救急搬送，精査加療目的に即日入院と

なった．

入院時現症：身長181.0 cm，体重46.7 kg，血圧109/72 mmHg，脈拍74/分，体温39.6℃．眼瞼結膜に貧血なし．腹部は平坦，硬，左側腹部に最強点を持つ圧痛と筋性防御あり，反跳痛も認められた．

入院時血液検査所見（表1）：WBC 19,190/ μ l（正常範囲：3,300-8,600/ μ l），CRP 7.06 mg/dl（正常範囲：0.00-0.14 mg/dl）であった．Hb 12.7 g/dl（正常範囲：13.7-16.8 g/dl）と軽度の貧血を認めた．血小板数は正常範囲内であった．凝固系ではDダイマー 4.8 μ g/ml（正常範囲：<1.0 μ /ml）と軽度の上昇を認めた．HbA1c 6.4%（正常範囲：4.9-6.0%）と軽度上昇を認めたが，脂質項目（TG, HDL, LDL）は基準範囲内であった．腫瘍マーカーはCEA, CA19-9ともに基準範囲内であった．

体外式腹部超音波検査（以下US）所見（使用機器 Canon Medical Systems, Apilo）（図1）：下行結腸に接し，内腔を圧排する70 mmの境界明瞭で輪郭平滑な腫瘍を認めた．腫瘍の内部エコーは高～低エコーが混在し，一部無エコーな領域も認められた（図1a）．腫瘍周囲組織は肥厚し，同部での圧痛を認めた．高周波プローブでの観察では（図1b），腫瘍は下行結腸の固有筋層を貫通し，大部分が粘膜下層に被覆され，

表1 入院時血液検査所見

全血		生化学			
WBC	19190 / μ l	TP	6.2 g/dl	LDL-C	74 mg/dl
RBC	374 10^4 / μ l	Alb	3.3 g/dl	CK	67 U/l
Hb	12.7 g/dl	T-Bil	2.0 mg/dl	Na	137 mmol/l
Ht	36.6 %	AST	20 U/l	K	3.5 mmol/l
MCV	97.9 fl	ALT	27 U/l	Cl	102 mmol/l
Plt	14.7 10^4 / μ l	γ GTP	23 U/l	Fe	7 μ g/ml
HbA1c	6.4 %	LDH	228 U/l	UIBC	200 μ g/ml
凝固系		ALP	95 U/l	TIBC	207 μ g/ml
PT	13.4 sec	ChE	113 U/l	フェリチン	144 μ g/ml
PT-INR	1.18	CRE	0.68 mg/dl	ABG	
APTT	32.7 sec	BUM	21 mg/dl	pH	7.431
Dダイマー	4.8 μ g/ml	Amy	35 U/l	PaCO ₂	40.7 mmHg
腫瘍マーカー		CRP	7.06 mg/dl	HCO ₃	26.5 mmol/l
CEA	4.3 ng/ml	TG	40 mg/dl	BE	2.0 mmol/l
CA19-9	13.0 U/ml	HDL-C	53 mg/dl	Lac	2.16 mmol/l

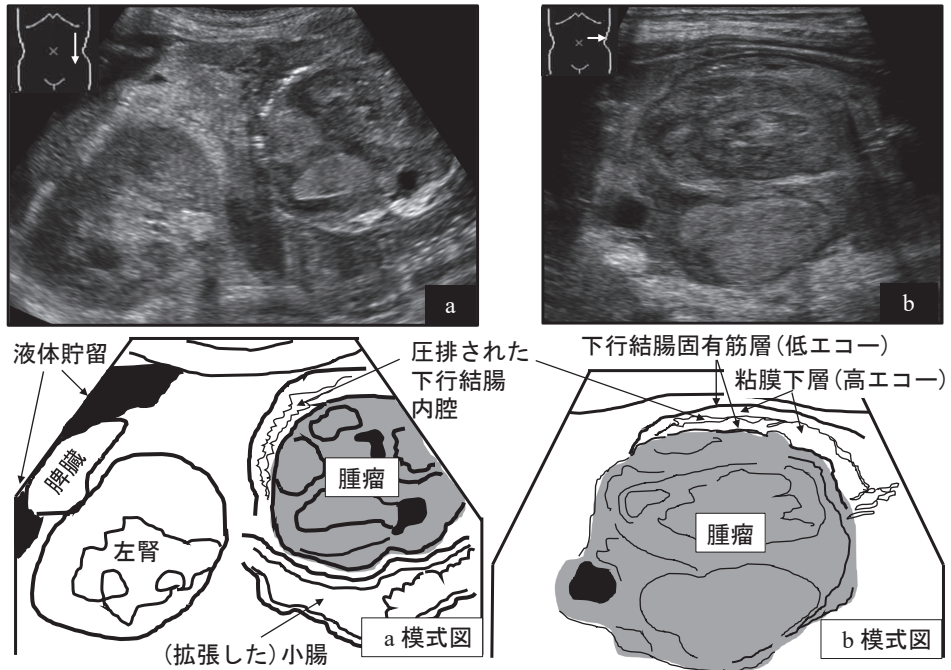


図1 体外式腹部超音波所見 (使用機器 Canon, Aplio)

(a) 左側腹部縦走査 (プローブ 4.0 MHz)

左腎と脾臓の一部が描出されている。脾臓周囲には液体貯留を認める。約70mmの輪郭不整で境界明瞭な低エコー主体の腫瘍が下行結腸の内腔 (高輝度のガスエコー) を圧排している。腫瘍内は高エコーから無エコーまで不均一である。腫瘍の奥には蠕動が低下し拡張した小腸が認められる。同部の圧痛を認めた。

(b) 左側腹部横走査 (プローブ 7.0 MHz)

腫瘍は下行結腸と不可分で、腫瘍は粘膜下腫瘍の形態である。腫瘍は内腔 (高輝度のガスエコー) との間で大部分が粘膜下層に被覆され、一部で固有筋に被覆されて見える部位を認める。腫瘍の周囲組織は肥厚し、漿膜と周囲組織との境界は不整である。

一部は固有筋層に被覆されて見える部位もあった。形態的には下行結腸内腔を圧排する粘膜下腫瘍 (submucosal tumor: SMT) の形態で、腸管壁と不可分であった。腫瘍の漿膜部分は不整で周囲組織との境界が不明瞭であった。腫瘍内部には color Doppler imaging で血流信号が認められなかった (図2)。下行結腸の粘膜下から発生した SMT か、腸管外で発生した腫瘍が腸管壁へと浸潤したものか判断が困難であった。SMT であれば、腫瘍の大部分が粘膜下層に被覆されていることから、固有筋層を主座とする gastrointestinal stromal tumor (GIST) が疑われるものの、内部血流を認めないことから否定的と考え、腸管外から発生した脂肪肉腫などの腹腔内腫瘍が漿膜を介し腸管壁へ浸潤した病態を

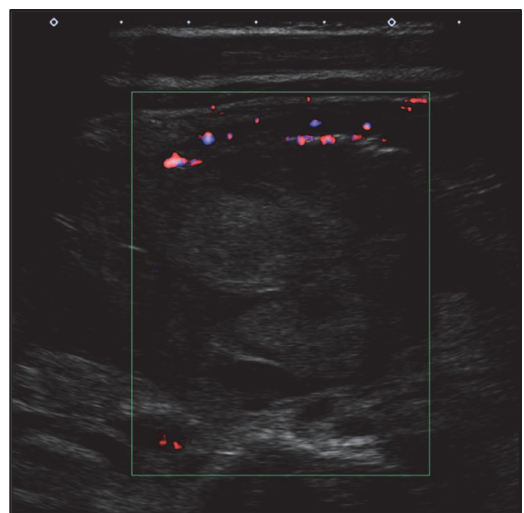


図2 体外式腹部超音波 color Doppler 所見 (使用機器 Canon, Aplio)
腫瘍内部に血流信号を認めない。

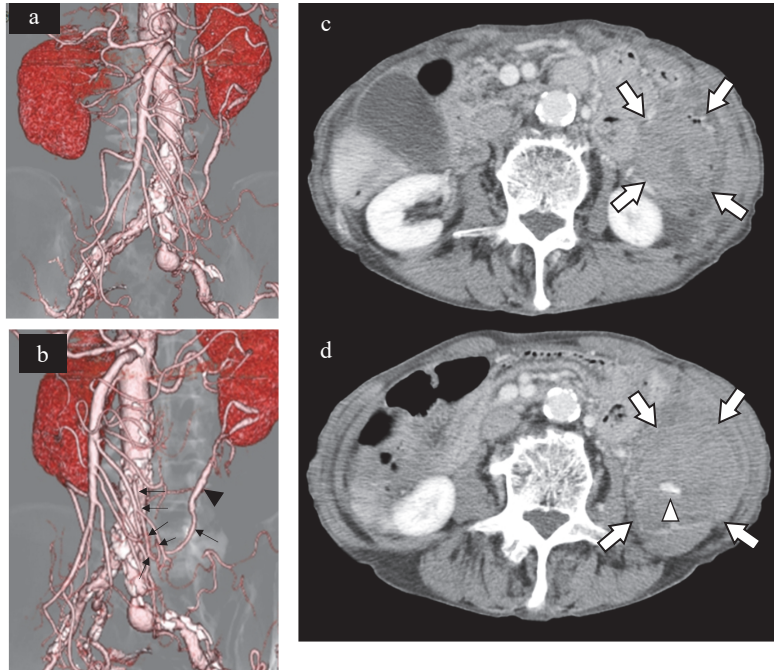


図3 造影CT所見とCT-angiography

(a) (b) CT-angiography

(a) 腹部大動脈壁には著明な石灰化を認める。(b) 腫瘍近傍の下腸間膜動脈(黒矢印)には動脈瘤形成を疑う紡錘状の拡張部(黒矢尻)を認める。

(c) (d) 造影CT

USで指摘した部位に内部に造影効果のない高吸収主体で筋肉よりもわずかに低吸収な腫瘍を認める(白矢印)。腫瘍内部の一部に造影剤の血管外漏出像が認められる(白矢尻)。

疑った。また腸間膜の広範囲な肥厚と小腸の広範囲な蠕動低下を認め、腹腔内に細胞成分を有する液体貯留を認めた。以上から、腹腔内腫瘍(脂肪肉腫など)の腸管浸潤疑い、腹腔内出血、汎発性腹膜炎と診断した。

腹部～骨盤造影CT(図3):大動脈壁には著明な石灰化を認めた。腹部USで指摘した部位に造影効果のない高吸収主体の腫瘍を認め、腫瘍は筋肉よりわずかに低吸収であった。腫瘍内の一部に造影剤の血管外漏出像を認め、近傍の下腸間膜動脈には動脈瘤形成を疑う紡錘状の血管拡張も認められた。CTでは腸管壁と連続して腫瘍が認められたことから、腸管壁内血腫の疑いと診断した。

臨床経過:下行結腸壁内血腫破裂による腹腔内出血および汎発性腹膜炎として、同日緊急下

行結腸部分切除術+人工肛門造設術を施行した。術中所見では、腹腔内には多量の鮮紅色の血性腹水が貯留しており、下行結腸の中間部分に70-80 mm大の血腫を認め、その漿膜側が破綻し、同部から出血していた。明らかな消化管穿孔は認めなかった。術後31日で自宅退院した。

病理組織学的検査所見(図4):SMT形態を呈した血腫で、血腫の主体は漿膜下層に認められ、一部粘膜下層にも認められた。漿膜付近では好中球の浸潤が目立つ部位が認められた。血腫部分では粘膜上皮含めて消化管層構造は不明瞭化していた。標本の一部の血管壁にはフィブリノイド変性を認め、病変に伴う二次性変化の可能性が示唆された。標本内には明らかな動脈硬化性変化は認められなかった。

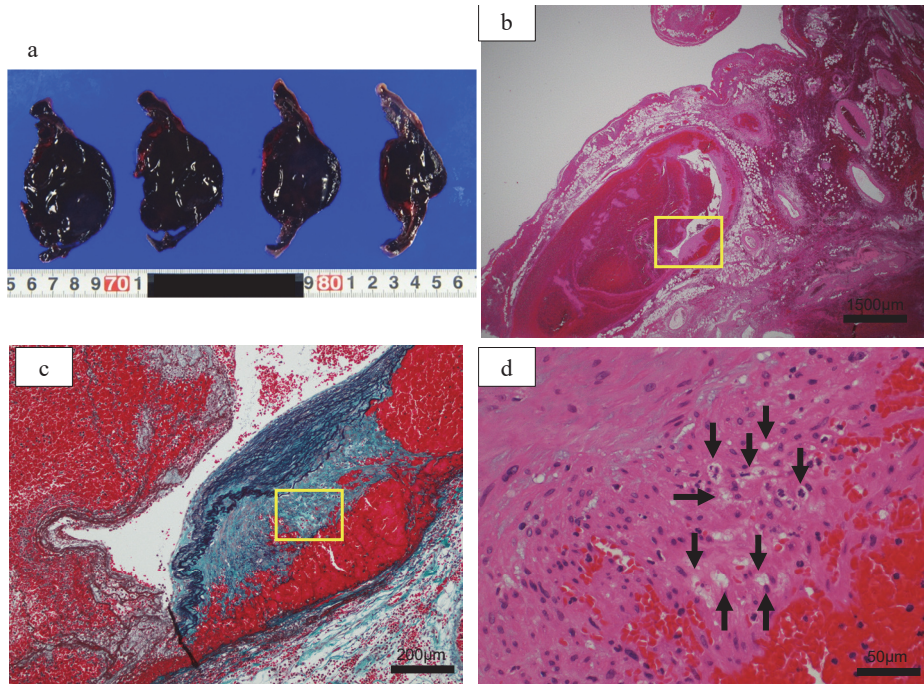


図4 病理組織学的所見

(a) 手術標本

血腫は粘膜下腫瘍の形態をとっている。血腫の大部分は漿膜側優位に認められ、一部は粘膜下層にも認められた。

(b) HE 染色 (対物×4)

標本内の血管壁に明らかな動脈硬化性変化は認められなかった。血管壁内にも外側優位に出血が認められた。

(c) E-Masson 染色 (対物×10)

(b) 黄枠部の拡大。

(d) HE 染色 (対物×40)

(c) 黄枠部の拡大。血管壁の一部に平滑筋細胞の空胞化が認められた (矢印)。

考 察

消化管壁内血腫は全ての消化管に起こるが、発症部位について、消化管壁内血腫274例をまとめた過去の報告では、十二指腸が最も多く(149例, 54.4%), 続いて小腸 40.5% (111例), 大腸 4.4% (12例), 食道 0.7% (2例) とされている¹⁾。結腸壁内血腫の発症部位について、30例をまとめた検討で、S状結腸またはS状結腸付近が最多で(33.3%), 次に上行結腸または上行結腸付近が多く(26.7%), 下行結腸または下行結腸付近は20%とされている³⁾。本邦での結腸壁内血腫の報告例14例をまとめた検討でも、S状結腸が42.9%と最多で、下行結腸は

1例(7.1%)のみである⁴⁾。同報告では、S状結腸に壁内血腫が多い理由として、S状結腸は腸間膜を有するため可動性が大きく、機械的刺激を受けやすいためと考察されている⁴⁾。

消化管壁内血腫の原因としては、十二指腸では外傷が多く(68.5%), 次に急性膵炎や膵癌といった膵由来(10.7%), 小腸では抗血栓療法(79.3%)が最多で、次にHenoch-Schölen purpura(14.4%)とされている¹⁾。結腸では、壁内血腫の原因は外傷が最多(33.3~53.3%)とされ、抗血栓療法(17.9~33.3%)が続く¹⁻⁵⁾。その他の結腸壁内血腫の原因としては、内視鏡的ポリープ切除術や内視鏡的大腸粘膜点墨術な

どの医原性や血友病や骨髄異形成症候群といった血液疾患症例での報告がある^{1, 4-7)}。明らかな外傷歴や内服薬のない結腸壁内血腫は消化管壁内血腫全体の1.1%で、結腸壁内血腫のうちでは10%程度と報告されている^{1, 3)}。本症例は外傷歴や内服薬、血液疾患などの明らかな誘因がなく、特発性と考えた。

結腸壁内血腫の臨床症状は、腹部不快感、腹痛、消化管閉塞、消化管出血が多く、腹腔内出血、出血性ショック、消化管穿孔の合併例も報告されている^{1, 4, 8-10)}。本症例では腸閉塞症状は認めなかったが、腹痛、腹腔内出血が認められた。

診断はCTでなされることが多く、特に造影CTが有用とされている。CTでは、SMT形態を呈する消化管壁の肥厚や、血腫部分の経時的な濃度変化（急性期は筋肉と比較し高濃度で、時間経過で吸収されて濃度が低下）、腹腔内液体貯留、などが特徴とされている^{2, 3, 11)}。また、造影CTでは、腫瘤内に造影効果がない、またはdynamic studyの後期相で腫瘤内に拡散する軽度の造影効果を持つことが報告されている^{2, 3, 9, 12)}。造影CTにより活動性出血を評価することで、緊急手術を行うかどうかの判断へ応用可能と考察されている報告もあるため³⁾、状況が許せば、造影CTを行うことが本疾患の診断・病態把握に有用と思われる。本症例でも、造影CTで腫瘤本体に造影効果がなく、一部に血管外への造影剤漏出所見が認められた。また、粘膜下の出血部を消化管内から確認できることから、下部消化管内視鏡検査（Colonoscopy: CS）も有用とする報告もあるが^{2, 4, 5, 13)}、本症例は緊急外科的治療の適応であったためCSは行っていない。

消化管壁内血腫のUS所見について、まとまった報告はない。過去の報告例²⁾では、疼痛部位の低エコー腫瘍と記載されている。同報告では、消化管壁における病変の主座の判読は困難なもの、輪郭平滑で境界明瞭な腫瘍で、内部は低エコー主体で不均一な等エコー部や線状高エコー部が混在しているUS画像が提示さ

れており、本症例と類似していた。この内部エコーの混在は、低エコーや無エコー部は出血した血液などの液体成分を反映し、高エコー部は出血後ある程度時間が経過し形成された血餅や血栓を反映しているものと思われる^{14, 15)}。本症例の手術標本でも、血腫内部の血餅や、付近の血管壁に二次性変化と思われるフィブリノイド変性が認められたことから、出血し始めてからある程度時間が経過した状態であったと考えられる。また、本症例のUS画像を動画で見返すと、腫瘤の一部で限局性に高エコー成分の持続性のゆらぎが認められたが、これは造影CTで血管外漏出として指摘された部位とほぼ同じ部位であったため、同部での活動性出血による血球成分や血餅の攪拌や振動を反映していた可能性が考えられる¹⁶⁾。

形態学的には消化管壁内血腫は粘膜下層に主座をもつSMTを呈するとされている^{2, 9, 10)}。本症例の手術標本もSMT形態を呈していた。消化管SMTの鑑別には、病変が消化管壁のどの層から発生しているか（主座が第何層か）、を判断する必要がある。そのためには内視鏡検査による形態学的な粘膜所見のみならず、USや超音波内視鏡検査（endoscopic ultrasonography: EUS）、CTなどの断層診断が重要である。正常の消化管壁をUSで見た場合、内腔面から順に第1層の高エコー（境界エコーおよび粘膜層の一部）、第2層の低エコー（粘膜層および粘膜筋板）、第3層の高エコー（粘膜下層）、第4層の低エコー（固有筋層）、第5層の高エコー（漿膜層+境界エコー）

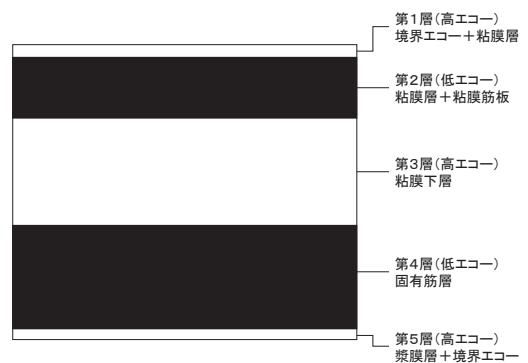


図5 超音波による腸管壁層構造の模式図（文献20から引用、一部改変）

表2 大腸粘膜下腫瘍の頻度と超音波内視鏡所見 (文献21, 22から引用, 一部改変)

	頻度 ²¹⁾	主座	内部エコー	エコーレベル	その他
脂肪腫	38%	第3層	均一	高エコー	深部減衰
直腸 NET	32%	第2～3層	比較的均一	低エコー	境界明瞭
リンパ管腫	11%	第3層	均一	無～低エコー	隔壁 多房性
GIST	10%	第4層	均一～不均一 (大きさや出血の 有無による)	低エコー (出血すると高～ 無エコー混在)	出血すると 石灰化
悪性リンパ腫	6%	第2～4層	比較的均一	等～低エコー	比較的軟

NET; neuroendocrine tumor, GIST; gastrointestinal stromal tumor

層の低エコー (固有筋層), 第5層の高エコー (漿膜層および境界エコー) の5層構造を呈する (図5)¹⁷⁻²⁰⁾. 本邦の大腸 SMT で頻度が最も高いものは脂肪腫で, 次に直腸神経内分泌腫瘍 (neuroendocrine tumor: NET), そしてリンパ管腫, 消化管間葉系腫瘍 (gastrointestinal stromal tumor: GIST), 悪性リンパ腫と続く (表2)²¹⁾. それぞれの EUS 所見は²²⁾, 脂肪腫は第3層に主座を持つ内部均一で減衰する高エコー腫瘍で, 直腸 NET は第2～3層に主座を持つ境界明瞭で比較的内部的均一な低エコーの腫瘍, リンパ管腫は第3層に主座を持つ内部無～低エコーな隔壁を伴う多房性 (または小嚢胞の集簇する) 腫瘍とされ, GIST は第4層 (まれに第2～3層: 粘膜筋板を反映) に主座をもつ境界明瞭な低エコー腫瘍で, 壊死や石灰化, 液状化を伴うと内部に無エコー域や高エコー域が混在することがある, と報告されている (表2).

本症例の US 診断に苦慮した原因としては, SMT の形態であることは指摘できたものの, 組織学的に粘膜下層から漿膜下層にかけて貫壁性の血腫を形成していたため主座の判断が困難であった点と, 漿膜 (第5層) と周囲組織との境界が血腫からの出血と周囲組織の肥厚によって不整であった点が腸管外からの腫瘍の直接浸潤を疑う所見と捉えた点が考えられる.

大腸 SMT と腹腔内出血との関連について, 上述した頻度の高い大腸 SMT (脂肪腫, 直腸 NET, リンパ管腫, GIST, 悪性リンパ腫) で, 医学中央雑誌で「それぞれの疾患名」「消化管」「腹腔内出血」で検索すると, 腹腔内出血に関連した報告例は GIST が最多であった. 従って,

腹腔内出血と大腸 SMT の検査前情報であれば, 検査前診断として GIST も鑑別に挙がる. しかし GIST では, 豊富な血流を反映した造影効果や Doppler imaging での血流信号を認めることも多い点^{23, 24)}, 本症例とは合致しなかった. 一方で, US での疑い病名とした脂肪肉腫は, 腹腔内脂肪組織を発生母地とし, 消化管への浸潤や腹腔内出血を来すこともある間質由来悪性腫瘍である. 画像所見は分化度により異なるが, 一般的には不均一な造影効果が認められることが多く, US では境界明瞭な低エコー主体で高エコーの混在した内部不均一な腫瘍で充実部に Doppler imaging で血流信号を認めるとされる²⁵⁻²⁷⁾. そのため, 本症例の US 所見では, 臨床経過や病態からも脂肪肉腫は除外できないと考えたが, 内部に血流信号がない点が相違点であったと考える.

以上から消化管壁内血腫の US 所見としては, 内部に Doppler で血流が認められない点, ゆらぎを伴う場合がある点が, 本疾患の鑑別に役立つ可能性がある. また, 本症例では時間的制約などもあり造影 US は行えていないが, 造影 US は質的診断のみならず病態・病勢評価にも有用であることが近年注目されており²⁸⁻³⁰⁾, 本症例でも造影 US を行うと, より詳細に評価できた可能性がある.

治療は保存的治療が原則とされるが, 腸閉塞や穿孔, 腹腔内出血を伴った場合は外科的治療が選択される^{1-4, 9, 10, 13)}. 本症例は腹腔内出血を来していたため, 外科的治療を選択した. 発症原因別の治療としては, 外傷性では外科的治療を勧める報告もあるが¹⁾, 近年の文献

レビューでは41.2%で保存的治療が選択され、いずれも良好な経過であったと報告されている³⁾。抗血栓療法起因性では、ワーファリンに対するビタミンKなどの拮抗薬を含めた保存的治療により多くの症例が治癒するとされている^{1, 4)}。しかし、経過観察中に増悪する症例の報告もあり、慎重な経過観察が必要と思われる^{4, 7)}。そして特発性では、本邦の特発性結腸壁内血腫報告例14例をまとめた報告で、83%で外科的治療が選択されており⁴⁾、外科的治療となった割合が多かった。

組織学的検討では、血腫を反映し、粘膜下層を主体に消化管壁内に多量の赤血球やフィブリン浸出液、肉芽が認められるとされている^{2, 4)}。出血源となった血管破綻部が同定困難であった症例も報告されている⁷⁾。本症例も、血腫部に多量の赤血球やフィブリン変性も認められ、既報と同様の所見であった。一方で、本症例での血腫は漿膜下層主体に認められ、一般的な消化管壁内血腫とは異なる病態や発生様式が関与した可能性も考えられた。

本症例は突然の腹腔内出血を来し搬送となったが、突然の腹腔内出血を来す疾患として、分節性動脈中膜融解 (segmental arterial mediolysis: SAM) が知られている³¹⁻³³⁾。SAMは動脈に発生する非炎症性・非アテローム動脈硬化性の変性疾患であり、腹部内臓動脈の分岐部よりも抹消の動脈壁に分節状に中膜融解、平滑筋細胞の液状変性を来し、動脈瘤を形成・破裂し、突然の腹腔内出血を起こす急性疾患である^{31, 32)}。SAMによる腹腔内血腫で下行結腸が圧排され閉塞を来し外科的治療となった症例も報告されている³²⁾。SAMの診断は病理組織学的あるいは画像的になされることが多いが、ゴールドスタンダードは病理組織学的診断とされている^{31, 34, 35)}。その組織学的発生機序は、まず中膜平滑筋細胞の空胞化が起こり、外側から中膜融解が分節状に引き起こされる。そして滲出やフィブリン沈着を伴った間隙形成が生じ、内弾性板の断裂や菲薄化により内・中膜の断裂が起き、残された外膜が拡張し動脈瘤が形成さ

れる。中膜融解が不規則に起こったことを反映し、拡張した動脈壁内に島状の中膜残存 (medial island) を認めるとされている^{31, 33, 34)}。しかし、検体採取が必要であることや、検体採取時の多くは緊急外科的治療であることと関連した採取時の侵襲による修飾、検体が採取できても病理学的変化が限定的な場合もあり、病理組織学的診断は必ずしも容易ではないことも指摘されている^{34, 35)}。実際、2013年の85例のレビューでは、26例 (30.6%) で病理組織学的診断がなく、画像所見から診断が行われていたとされている³⁵⁾。本症例について、追加で病理学的検索を行うと、内膜中膜平滑筋細胞の空胞化を認め、また外側優位の血管壁内出血も認められたことから、背景にSAMを含めた動脈瘤が存在していた可能性が示唆された (図4)。SAMの画像上の特徴は、動脈拡張・狭窄、(紡錘状) 動脈瘤、数珠状変化 (string-of-beads)、などとされている^{32, 35)}。かつては血管造影での評価が求められていたが、近年ではCT-angiographyによる評価も代用されている^{32, 33, 35)}。本症例では、下腸間膜動脈に紡錘状拡張や動脈拡張が認められた。臨床的診断基準も提案されており、①中高齢者に、②炎症性変化や動脈硬化性変化などの基礎疾患がなく、③突然の腹腔内出血で発症し、④血管造影検査で血管に数珠状の不整な拡張と狭窄が認められること、が挙げられている³⁶⁾。本症例では、腹部大動脈壁には石灰化が認められるものの、病理組織学的には手術標本内に動脈硬化性変化が認められなかった。

以上から、本症例の病態として、組織学的に動脈瘤の存在が示唆されたこと、画像所見で紡錘状の動脈瘤や動脈拡張が認められたこと、中高齢者で突然の腹腔内出血で発症した臨床経過などを総合的に考慮すると、基礎疾患に元々SAMが存在しており、生活習慣 (喫煙) などによって動脈壁石灰化が合併した病態であった可能性が考えられる。SAMの原因や長期予後などは明らかになっておらず、動脈瘤が残存していた場合でも経過中に線維化により動脈瘤が縮小・消失し治癒する症例があることも知られ

ている³⁴⁾。本症例については、紹介元で画像検査含め定期的な経過観察の方針である。

結 語

消化管壁内血腫は稀な疾患であるが、腹腔内出血を来すこともあり、また SMT の鑑別診断として重要である。

本論文における利益相反

なし

引用文献

- 1) Hughes CE 3rd, Conn J Jr, Sherman JO: Intramural hematoma of the gastrointestinal tract. *Am J Surg*. 1977; 133: 276-279. doi: 10.1016/0002-9610(77)90528-1.
- 2) Umeda I, Ohta H, Doi T, Nobuoka A, Kanisawa Y, Kawasaki R, Iwai K: Idiopathic intramural hematoma of the colon. *Gastrointest Endosc*. 2007; 66: 861-864. doi: 10.1016/j.gie.2007.02.003.
- 3) Nozu T: Idiopathic spontaneous intramural hematoma of the colon: a case report and review of the literature. *Clin J Gastroenterol*. 2009; 2: 161-165. doi: 10.1007/s12328-008-0061-9.
- 4) 井村仁郎, 宮田完志, 湯浅典博, 竹内英司, 後藤康友, 三宅秀夫, 永井英雅, 村田嘉彦, 小林陽一郎, 藤野雅彦: 特発性壁内血腫による S 状結腸穿孔の 1 例. *日消外会誌*. 2012; 45: 552-558.
- 5) Kwon K, Cheung DY, Seo Y, Kim SB, Bae KN, Kim HJ, Kim JI, Park SH, Kim JK: Supportive management resolved a colonic intramural hematoma in an anticoagulant user. *Intern Med*. 2014; 53: 1505-1509. doi: 10.2169/internalmedicine.53.2358.
- 6) Nakayama Y, Fukushima M, Sakai M, Hisano T, Nagata N, Shirahata A, Itoh H: Intramural hematoma of the cecum as the lead point of intussusception in an elderly patient with hemophilia A: report of a case. *Surg Today*. 2006; 36: 563-565. doi: 10.1007/s00595-006-3185-x.
- 7) 上村和康, 萩尾浩太郎, 磯野忠大, 植田猛, 芦沢直樹, 中田晴夏, 橘充弘: 骨髄異形成症候群を背景とし抗凝固療法中に発症した上行結腸壁内血腫の 1 例. *日臨外会誌*. 2014; 75: 2789-2794.
- 8) Yang J, Liu Y, Yan P, Tian H, Jing W, Si M, Yang K, Guo T: Comparison of laparoscopic cholecystectomy with and without abdominal drainage in patients with non-complicated benign gallbladder disease: A protocol for systematic review and meta analysis. *Medicine (Baltimore)*. 2020; 99: e20070. doi: 10.1097/MD.00000000000020070.
- 9) Vecchio R, Cacciola E, Figuera M, Catalano R, Giulla G, Distefano ER, Intagliata E: Idiopathic intramural hematoma of the right colon. A case report and review of the literature. *Int J Surg Case Rep*. 2019; 60: 16-20. doi: 10.1016/j.ijscr.2019.05.004.
- 10) García Marín A, Martín Gil J, Sánchez Rodríguez T, Díaz-Zorita B, Turégano Fuentes F: Spontaneous intramural hematoma of the cecum. *Rev Esp Enferm Dig*. 2009; 101: 296-297. doi: 10.4321/s1130-01082009000400011. (Article in Spanish).
- 11) Parizel PM, Makkat S, Van Miert E, Van Goethem JW, van den Hauwe L, De Schepper AM: Intracranial hemorrhage: principles of CT and MRI interpretation. *Eur Radiol*. 2001; 11: 1770-1783. doi: 10.1007/s003300000800.
- 12) Liu Y, Yang S, Tong Q: Spontaneous intramural hematoma of colon. *Clin Gastroenterol Hepatol*. 2012; 10: e38. doi: 10.1016/j.cgh.2011.11.003.
- 13) Wang J, Sun X, Shi H, Cao D: Intramural hematoma of colon: Case report of 2 cases. *Medicine (Baltimore)*. 2020; 99: e19404. doi: 10.1097/MD.0000000000019404.
- 14) Miyatani H, Yoshida Y: Usefulness of endoscopic ultrasonography with a microprobe in the diagnosis of aortoesophageal fistula. *J Med Ultrason (2001)*. 2007; 34: 205-207. doi: 10.1007/s10396-007-0155-x.
- 15) Akiyama T, Inamori M, Saito S, *et al.*: Levovist ultrasonography imaging in intracystic hemorrhage of simple liver cyst. *World J Gastroenterol*. 2008; 14: 805-807. doi: 10.3748/wjg.14.805.
- 16) Nam KH, Yeom E, Ha H, Lee SJ: Velocity field measurements of valvular blood flow in a human superficial vein using high-frequency ultrasound speckle image velocimetry. *Int J Cardiovasc Imaging*. 2012; 28: 69-77. doi: 10.1007/s10554-010-9778-x.
- 17) 畠二郎, 山下都, 中武恵子, 竹之内陽子, 谷口真由美, 原文女: 各論 1. 消化管の正常像と異常像. *Medical Technology 別冊超音波エキスパート 5 消化管超音波検査 - 描出のコツと判読のポイント* (編者: 長谷川雄一, 遠田栄一). 東京, 医歯薬出版株式会社. 2006, pp27-33.
- 18) 畠二郎, 楠裕明, 鎌田智有, 春間賢: 体外式超音波による消化管疾患の診断. *日消誌*. 2004; 101: 746-754.

- 19) 畠二郎, 今村祐志, 眞部紀明, 他: 消化管の体外式超音波. 胃と腸. 2016; 51: 917-926.
- 20) 西田睦, 長谷川雄一, 畠二郎: 2. 消化管の解剖と消化管壁層構造. 消化管エコーの基本操作 ver.2 (編集: 消化管エコー研究会). 横浜, ユー・エス・アカデミー. 2002, pp4-55.
- 21) 松本主之, 中村昌太郎, 中村滋郎, 平川克哉, 天野角哉, 小林広幸, 多田修治, 瀧上忠彦, 飯田三雄: 消化管粘膜下腫瘍の内視鏡診断: 通常内視鏡所見からみた鑑別診断 2) 下部消化管. 胃と腸. 2004; 39: 457-466.
- 22) 小林清典, 小川大志, 春木聡美, 横山薫, 佐田美和, 勝又伴栄, 西元寺克禮: 大腸粘膜下腫瘍の内視鏡診断. Gastroenterol Endosc. 2007; 49: 2462-2473.
- 23) Kamata K, Takenaka M, Kitano M, *et al.*: Contrast-enhanced harmonic endoscopic ultrasonography for differential diagnosis of submucosal tumors of the upper gastrointestinal tract. J Gastroenterol Hepatol. 2017; 32: 1686-1692. doi: 10.1111/jgh-13766.
- 24) Sakamoto H, Kitano M, Matsui S, Kamata K, Komaki T, Imai H, Dote K, Kudo M: Estimation of malignant potential of GI stromal tumors by contrast-enhanced harmonic EUS (with videos). Gastrointest Endosc. 2011; 73: 227-237. doi: 10.1016/j.gie.2010.10.011.
- 25) 三浦要平, 坂田純, 安藤拓也, 他: 腹腔内出血を契機に発見された混合型脂肪肉腫の1例. 癌と化学療法. 2017; 44: 1155-1157.
- 26) 小林龍太郎, 山口直哉, 加藤岳人, 平松和洋, 柴田佳久, 吉原基, 青葉太郎, 神谷忠弘, 前田松喜: 有茎性粘膜下腫瘍の様相を呈した上行結腸脂肪肉腫の1例. 日消外会誌. 2019; 52: 672-678.
- 27) Miwa T, Otsuji K, Aiba M, Kochi T, Toda K, Nakamura N, Katsumura N, Miyazaki T, Shimizu M: Ultrasonographic findings and diagnosis of omental dedifferentiated liposarcoma: a case report. J Rural Med. 2020; 15: 68-72. doi: 10.2185/jrm.2019-013.
- 28) Kawai R, Hata J, Manabe N, Imamura H, Iida A, Nakatou R, Koyama N, Hirai T, Sadahira Y: Contrast-enhanced ultrasonography with Sonazoid for diagnosis of gangrenous cholecystitis. J Med Ultrason (2001). 2016; 43: 193-199. doi: 10.1007/s10396-015-0677-6.
- 29) 畠二郎, 今村祐志, 眞部紀明, 河合良介, 飯田あい: 腹部領域における造影超音波の最新動向 肝疾患以外の領域への適応拡大と今後の展望. INNERVISION. 2017; 32: 10-13.
- 30) 畠二郎, 今村祐志, 眞部紀明, 楠裕明, 塩谷昭子: 炎症性腸疾患の検査・診断 炎症性腸疾患の画像診断 体外式超音波検査. 日本臨床. 2018; 76: 238-242.
- 31) Slavin RE, Gonzalez-Vitale JC: Segmental mediolytic arteritis: a clinical pathologic study. Lab Invest. 1976; 35: 23-9.
- 32) Michael M, Widmer U, Wildermuth S, Barghorn A, Duestell S, Pfammatter T: Segmental arterial mediolysis: CTA findings at presentation and follow-up. AJR Am J Roentgenol. 2006; 187: 1463-1469. doi: 10.2214/AJR.05.0281.
- 33) Yoshida H, Ukai K, Sugimura M, *et al.*: A case report of segmental arterial mediolysis in which computed tomography angiography was useful for diagnosis. Clin J Gastroenterol. 2013; 6: 447-453. doi: 10.1007/s12328-013-0433-7.
- 34) 稲田潔, 池田庸子, 平川栄一郎, 下川邦泰: 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.
- 35) Shenouda M, Riga C, Naji Y, Renton S: Segmental arterial mediolysis: a systematic review of 85 cases. Ann Vasc Surg. 2014; 28: 269-277. doi: 10.1016/j.avsg.2013.03.003.
- 36) 内山大治, 小金丸雅道, 安陪等思, 富田直史, 野々下政昭, 檜垣賢作, 坂本照夫, 早瀬尚文: 原因に segmental mediolytic arteriopathy が疑われた腹腔内出血症例に対し塞栓術が有用であった1例. IVR. 2005; 20: 278-281.

〈Case Report〉

Intramural hematoma of the descending colon with intraperitoneal hemorrhage: a case report

Rui NAKATO¹⁾, Jiro HATA¹⁾, Tamako TAKATA²⁾, Hiroshi IMAMURA¹⁾
Masaharu HIGASHIDA³⁾, Hirotake NISHIMURA⁴⁾, Kazuya YASOKAWA⁵⁾
Shinya FUKUSHIMA⁶⁾, Shumei MINETA³⁾, Shunji ENDO³⁾, Tomio UENO³⁾
Noriaki MANABE¹⁾, Eiji UMEGAKI⁶⁾, Akiko SHIOTANI⁶⁾, Ken HARUMA⁷⁾

1) Department of Endoscopy and Ultrasound, Kawasaki Medical School

2) Internal Medicine, Mitsubishi Mihara Hospital

3) Department of Digestive Surgery,

4) Department of Pathology,

5) Department of Diagnostic Radiology,

6) Department of Gastroenterology,

7) Department of General Internal Medicine 2, Kawasaki Medical School

ABSTRACT Intramural hematoma of the colon is a rare disease, accounting for 4.4% of all gastrointestinal intramural hematomas. The causes of these gastrointestinal intramural hematomas are mostly related to trauma and antithrombotic therapies and might be idiopathic in approximately 1.1% of the cases. A search of the Ichu-Shi Web (Japan Centra Revno Medicia, Japan Medical Abstract Society) database yielded 29 reported cases of intramural hematoma of the colon, of which only 3 cases were associated with intraperitoneal hemorrhage in Japan. Here we report a case of intramural hematoma of the descending colon that caused intraperitoneal hemorrhage without a history of trauma or antithrombotic therapy. The patient was a male in his 70s who presented to a local hospital complaining of left abdominal pain of sudden onset a day prior without any apparent trigger. Computed tomography (CT) revealed a mass in the descending colon and ascites, and he was referred to our hospital. In our hospital, abdominal ultrasonography (US) revealed a well-defined mass of approximately 70 mm, similar to the form of a submucosal tumor (SMT) that compressed the lumen of the descending colon and was inseparable from the intestinal wall. The mass was non-echoic and hyperechoic, and no blood flow signal was observed with color Doppler imaging. An intra-abdominal tumor infiltration into the colon wall was suspected. In addition, generalized peritonitis and intraperitoneal hemorrhage were observed. Contrast-enhanced CT (CE-CT) showed a mass with slightly lower density than that of the muscles, which continued with the intestinal wall of the descending colon and a spindle-shaped aneurysm in the vicinity of the mass. With a diagnosis of intramural hematoma of the descending colon complicated by peritoneal hemorrhage, an emergency surgical treatment was performed. Intraoperative findings showed that bloody red ascites had accumulated in the abdominal cavity, the serosa of the intramural hematoma of the descending colon was ruptured, and bleeding continued from the same site. Histology of

the surgical specimen revealed that the hematoma was located from the submucosa to the subserosal layer, and the main component was located in the subserosal layer. There were no apparent arteriosclerotic changes in the surgical specimen. Intramural hematoma of the colon presents with SMT morphology and is generally treated conservatively. However, it may be accompanied by a gastrointestinal obstruction, intraperitoneal hemorrhage, and hemorrhagic shock, in which case surgical therapy is selected. CE-CT is useful for diagnosis. US shows an SMT morphology, and the absence of blood flow signals inside the mass may help in its differentiation. Based on the patient's history, findings from imaging examinations, and histological findings, segmental arterial mediolysis might have been present in the pathological background of this patient. *(Accepted on April 30, 2021)*

Key words : **Idiopathic intramural hematoma of the colon, Intraperitoneal hemorrhage, Segmental arterial mediolysis (SAM)**

Corresponding author
Rui Nakato
Department of Endoscopy and Ultrasound, Kawasaki
Medical School, 577 Matsushima, Kurashiki, 701-0192,
Japan

Phone : 81 86 462 1111
Fax : 81 86 462 1199