

図 43 生食バブルの作成方法

を施行するなどの胸部単純 X 線写真と経胸壁コントラスト心エコーを併用してのスクリーニング検査も推奨されている²⁾。

一方、経食道コントラスト心エコーは経胸壁コントラスト心エコーと比較すると、より高感度であるがより侵襲的で、HHT で症候性患者には適切でない場合がある⁴⁾。経胸壁コントラスト心エコーの限界としては肺動静脈奇形の局在を診断するのは困難であり、局在の評価には CT が必要である⁵⁾。経胸壁コントラスト心エコー法はスクリーニングのみならず、肺動静脈奇形に対する動脈塞栓術など治療後の効果判定にも有用とされている⁵⁾。近年経胸壁コントラスト心エコーにおいて陽性の場合に左心系に認められるバブルの数によってグレード分けをし、バブルの数が多いほど CT における検出率が高く、また肺動静脈奇形に対する治療が必要であったとの報告がある^{6-8,9)}。このように治療適応の可否についても経胸壁コントラスト心エコーが有用である可能性がある⁷⁾。バブルの数が少ないと CT では検出できない場合があるが、それは微小肺動静脈奇形の存在を示唆している可能性もあり、バブルの数が少ないグループの経過観察にはコントラスト心エコー法が勧められている⁷⁾。

b. コントラスト心エコー法の方法

肺動静脈奇形の診断のためのコントラスト剤は、生理食塩水を手攪拌して作成する生食バブルを用いる。生理食塩水を手攪拌すると平均 $20\mu\text{m}$ の気泡が得られる。 $10\mu\text{m}$ 以下の気泡は肺毛細血管を通過するが、それ以上になると通過しない。そのため通常静脈から生食バブルを注入すると右心系のみで造影され

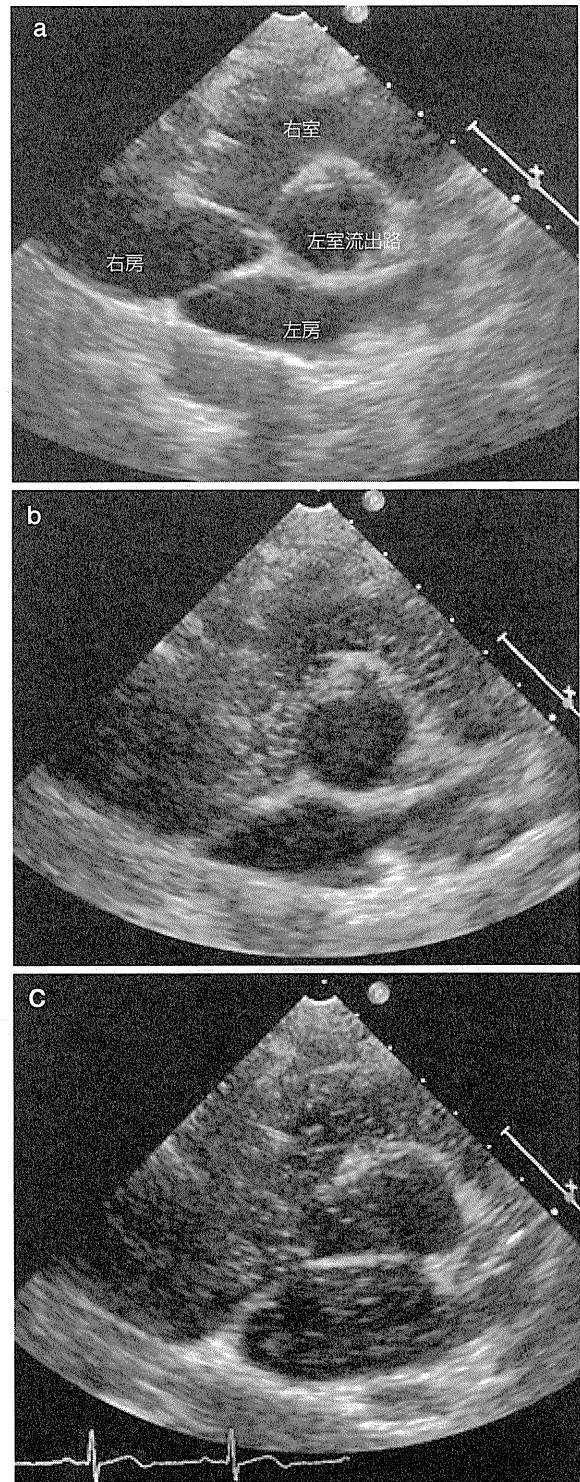


図 44 肺動静脈奇形症例における生食バブルによるコントラストエコー

a: 生食バブル注入前

b: 生食バブル注入直後は右心系のみが造影

c: 生食バブル注入数拍後に生食バブルが左房内に流入し、左心系が造影

る。生食バブルにより左心系が造影された場合は、肺毛細血管を介さない右-左シャントの存在が明らかとなる。方法としては三方活栓に10mlのシリンジを2つ付けて9mlの生食と1mlの空気を何度も勢いよく交互に押し込み攪拌してマイクロバブルを作る(図43)。しかし気泡は不安定ですぐに消えてしまう。そのため生食バブルは評価直前に作る。また気泡を安定化させるために冷生食を用いたり、バブル作成時に患者の血液を1~2滴ほど生食に混入させ気泡を安定化させる。また経食道心エコー時には鎮静のために用いられたジアゼパムを生食に混入させ気泡を安定化させる方法もある¹⁰⁾。

c. コントラスト心エコーの評価

図44は肺動静脈奇形における生食バブルのコント

ラスト心エコーである。生食バブルを経静脈的に注入直後に右心系のみが染色され、その数拍後に左心系が染色された。右-左シャントには肺動脈奇形以外にも卵円孔開存や心房中隔欠損症などがある。肺動静脈奇形との鑑別点は卵円孔開存の場合は、右房圧の上昇がない場合は、Valsalva 負荷後に右房が染色された後1拍以内に左房が染色される。心房中隔欠損症はValsalva 負荷なしに右房が染色された後1拍以内に左房が染色される。肺動静脈奇形の場合はValsalva 負荷なしに生食バブルを注入し右房が染色した後、数拍後に左房が染色される^{2,3)}。また卵円孔開存は健常者の25%以上にみられるとの報告もあり、HHT と合併している場合も考えられる。肺動静脈奇形が存在する場合は特に肺静脈にコントラストが強く増強されるのを診断の助けとする²⁾。

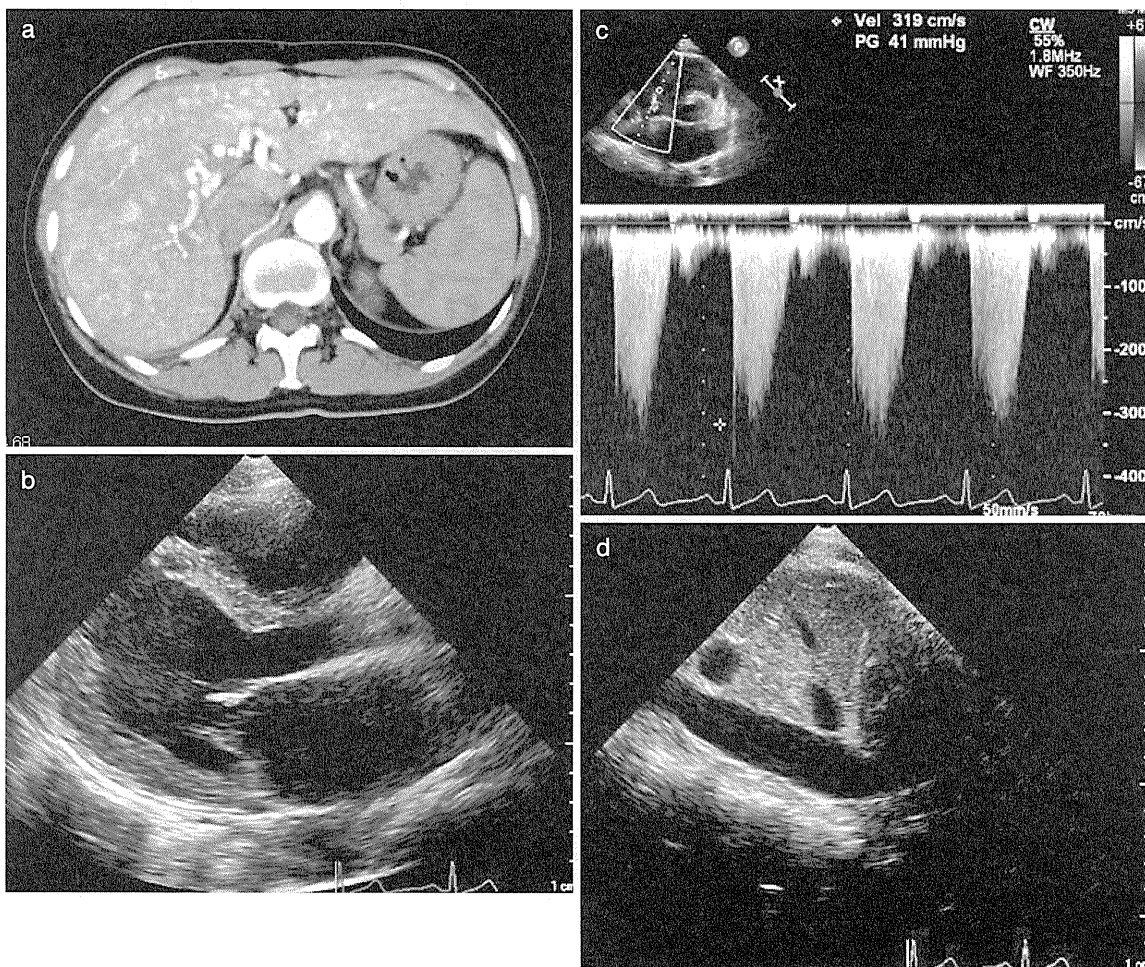


図45 HHT に肝動静脈奇形、高心拍出性心不全を合併した症例

- a: 造影CTによる肝動静脈奇形
- b: 左室、左房、右室の拡大がみられる。
- c, d: 三尖弁逆流の連続波ドプラ波形、下大静脈の拡大により肺動脈収縮期圧の上昇が示唆される。

2. 心臓合併症の診断における有用性

HHTは肺以外にも鼻、脳、脾臓、胃、そして肝臓など全身に動静脈奇形を形成する(図42)。肺以外は通常左-右シャントを示す(図42)。左-右シャントを示す動静脈奇形は、血液循環として機能していないことから、全身の循環動態を維持するために、心臓は高心拍出状態となる。シャント量が多ければ、高心拍出性心不全を生じることがある^{1,11)}(図45)。また交感神経系、レニン-アンギオテンシン-アルドステロン系の亢進、アルギニン-バゾプレッシン系の賦活化が起こり、慢性的な循環血液量の増加を引き起こし、高心拍出性心不全を生じることが考えられる^{12,13)}。多くは肝臓の動静脈奇形が原因で生じる^{2,11,12,14)}。心エコー図所見としては、①右室、右房の内腔拡大、ときに左心系の内腔拡大、②左室の過大な壁運動異常、③心嚢液貯留、④三尖弁逆流と肺高血圧の存在、⑤高心拍出量状態、があげられる^{2,11,13)}。収縮機能は心エコーでは左室駆出率や内径短縮率や僧帽弁逆流症を用いた等容性圧上昇率などで評価できる。また弁輪移動速度の収縮期波S'を用いた評価法もある。収縮機能障害が診断できれば、低心拍出性心不全の診断ができる。しかしながら、高心拍出性心不全の基礎疾患がないことにはならない。また左室流出路でのパルスドプラの速度時間積分と流出路の面積から算出される心拍出量も高心拍出性心不全の診断に有用である。肺高血圧の診断には三尖弁逆流の連続波ドプラや右室駆出血流速波形、また収縮期の左室形態などを用いて収縮期肺動脈圧を推定する。

■文献

- 1) Faughnan ME, Palda VA, Garcia-Tsao G, et al. International guidelines for the diagnosis and management of hereditary hemorrhagic telangiectasia. *J Med Genet.* 2011; 48(2): 73-87.
- 2) Cottin V, Dupuis-Girod S, Lesca G, et al. Pulmonary vascular manifestations of hereditary hemorrhagic telangiectasia (Rendu-Osler disease). *Respiration.*

- 2007; 74(4): 361-78.
- 3) Shub C, Tajik AJ, Seward JB, et al. Detecting intrapulmonary right-to-left shunt with contrast echocardiography. Observations in a patient with diffuse pulmonary arteriovenous fistulas. *Mayo Clin Proc.* 1976; 51(2): 81-4.
- 4) Cottin V, Plauchu H, Bayle JY, et al. Pulmonary arteriovenous malformations in patients with hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Am J Respir Crit Care Med.* 2004; 169(9): 994-1000.
- 5) Barzilai B, Waggoner AD, Spessert C, et al. Two-dimensional contrast echocardiography in the detection and follow-up of congenital pulmonary arteriovenous malformations. *Am J Cardiol.* 1991; 68(15): 1507-10.
- 6) Zukotynski K, Chan RP, Chow CM, et al. Contrast echocardiography grading predicts pulmonary arteriovenous malformations on CT. *Chest.* 2007; 132(1): 18-23.
- 7) van Gent MW, Post MC, Snijder RJ, et al. Grading of pulmonary right-to-left shunt with transthoracic contrast echocardiography: does it predict the indication for embolotherapy? *Chest.* 2009; 135(5): 1288-92.
- 8) Gazzaniga P, Buscarini E, Leandro G, et al. Contrast echocardiography for pulmonary arteriovenous malformations screening: does any bubble matter? *Eur J Echocardiogr.* 2009; 10(4): 513-8.
- 9) Parra JA, Bueno J, Zarauza J, et al. Graded contrast echocardiography in pulmonary arteriovenous malformations. *Eur Respir J.* 2010; 35(6): 1279-85.
- 10) 高野真澄. 心腔内コントラストは、どんな時に施行すべきですか. *心エコー.* 2007; 8: 1068-73.
- 11) Clayton T, Banks KP, Bui-Mansfield LT. AJR teaching file: High-output cardiac failure in a patient with a history of hereditary hemorrhagic telangiectasia. *AJR Am J Roentgenol.* 2006; 187(6 Suppl): S508-10.
- 12) Blum A, Shalabi R. Osler-Weber-Rendu (OWR) disease and heart failure. *Clin Med Cardiol.* 2009; 3: 121-3.
- 13) 西上和宏, 本田 喬. 低心拍出性心不全と高心拍出性心不全の診かた. *Heart View.* 2008; 12(2): 146-50.
- 14) Hisamatsu K, Ueeda M, Ando M, et al. Peripheral arterial coil embolization for hepatic arteriovenous malformation in Osler-Weber-Rendu disease; useful for controlling high output heart failure, but harmful to the liver. *Intern Med.* 1999; 38(12): 962-8.

〈寺田 舞 渡邊博之 伊藤 宏〉

4

内臓動静脈奇形

A. 肺

4) 日本における遺伝性出血性末梢血管拡張症に合併する肺動静脈奇形

(2010年全国アンケート調査結果)

POINTS

- ◎日本においては、PAVM 症例のうち約 25%が HHT に合併している。
- ◎HHT 合併 PAVM では性差はみられないが、HHT 非合併 PAVM では女性が多い。
- ◎HHT 合併 PAVM では約 80%で鼻出血が合併する。
- ◎PAVM に起因するほとんどの奇異性膿瘍は脳に発症するが、脳以外にも生じる。
- ◎HHT 合併 PAVM は多発例が多く、その分布は HHT, HHT 非合併ともに下葉に多く分布する。
- ◎PAVM の治療に関してはコイル塞栓術が行われているが、約 20%では外科的切除が行われている。

1. 全国アンケート調査

平成 21 年度および平成 22 年度厚生労働省科学研究費補助金（難治性疾患克服研究事業）、「遺伝性出血性末梢血管拡張症（オスラー病）に関する遺伝疫学的検討と診療ガイドラインの作成」を得て、遺伝性出血性末梢血管拡張症に合併する肺動静脈奇形に関する全国アンケート調査結果が行われた。

全国アンケート調査は、日本呼吸器学会の許可を得て、日本呼吸器学会の指導医および専門医 4,409 名に対して、平成 21 年 7 月から平成 22 年 7 月までに経験した肺動静脈奇形 pulmonary arteriovenous malformation (PAVM) および遺伝性出血性末梢血管拡張症 hereditary hemorrhagic telangiectasia (HHT) に合併す

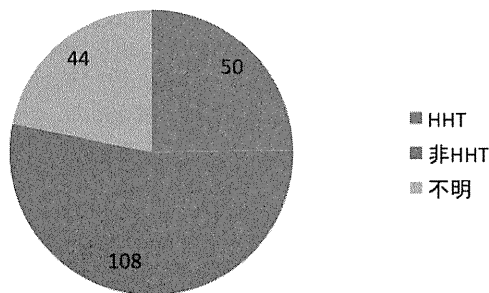


図 46 HHT 合併、非合併 PAVM の新規患者数 (人/年)

る PAVM に関して第一次調査を行った。次に、第一次調査で返信があった指導医および専門医 338 名に関して、HHT および PAVM の詳細に関して第二次調査を行った。

2. 第一次調査結果

2062 名から回答（回答率 46.8%）を得た。症例あり 338 名、なし 1724 名。症例数 522 例、HHT 合併 85 例（合併率 16.3%）、PAVM 単発 315 例（60.3%）、多発 162 例（31.0%）、家族性 PAVM 43 例。治療は経皮カテーテル塞栓術〔コイル 179 例（34.3%）、バルーン 3 例、その他 4 例〕、外科手術 74 例（14.2%）、経

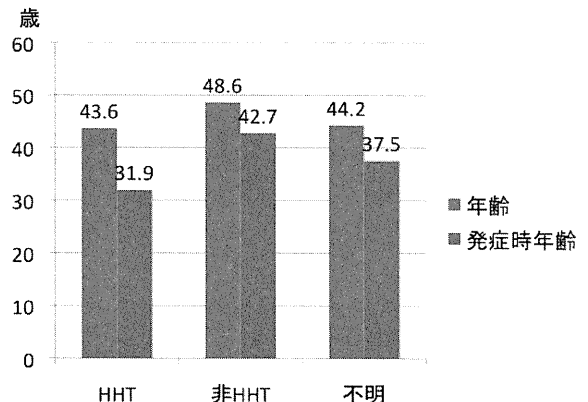


図 47 受診時年齢と発症時年齢

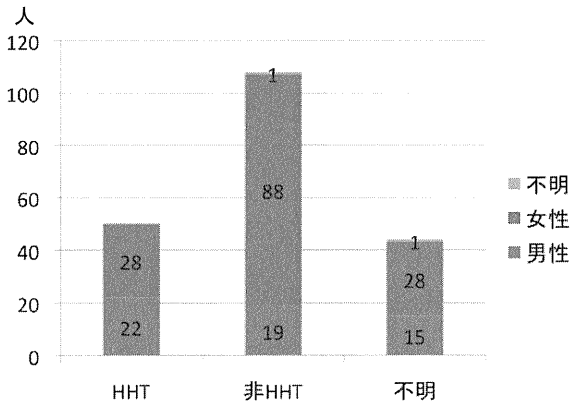


図 48 性差

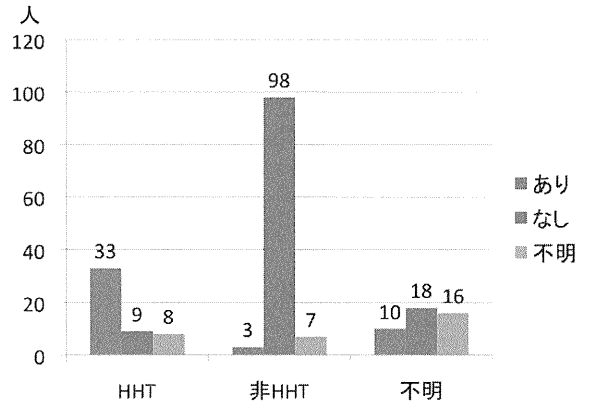


図 49 家族歴

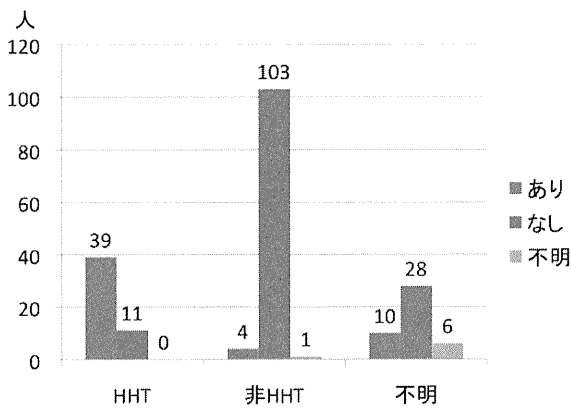


図 50 鼻出血の合併

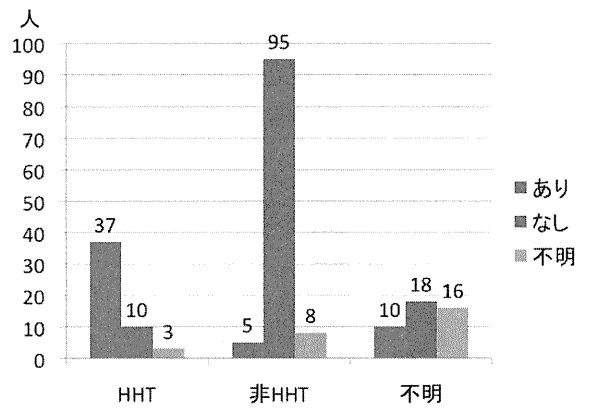


図 51 多臓器 AVM あるいは末梢血管拡張の合併の有無

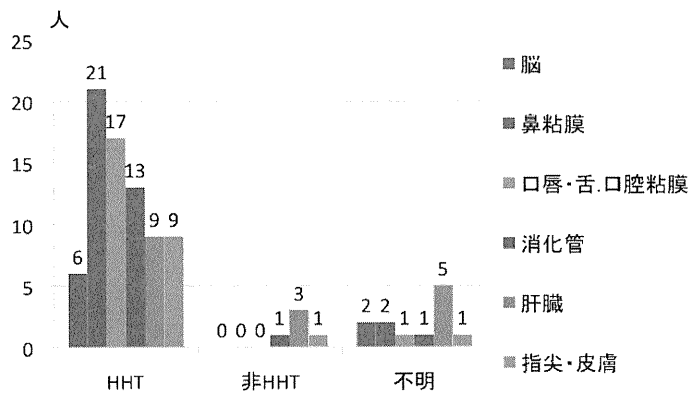


図 52 多臓器 AVM あるいは末梢血管拡張の部位

過観察 203 例 (38.9%) であった。

54.4%) から回答を得た (平成 22 年 12 月 17 日現在)。

3. 第二次調査結果

第一次調査において回答があった 338 名に対して第二次アンケート調査を行った結果、184 名 (回答率

a. 患者背景

HHT 合併、非合併 PAVM の新規患者数 (図 46)、受診時年齢と発症時年齢 (図 47)、性差 (図 48)、家族歴 (図 49) の結果をそれぞれ示す。

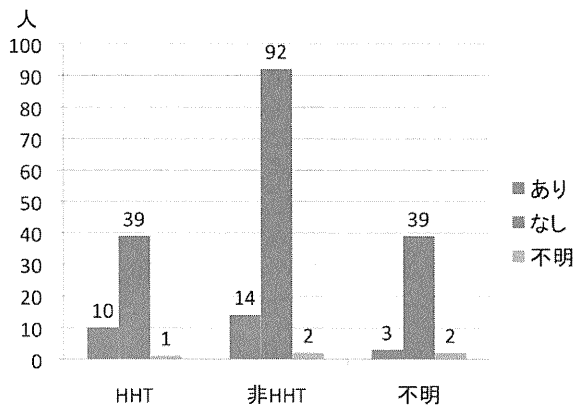


図 53 奇異性脳膿瘍の合併

注: HHT 群の 1 例が膝関節膿瘍, 非 HHT 群の 1 例が深部長腰筋膿瘍, それ以外は全例が脳膿瘍

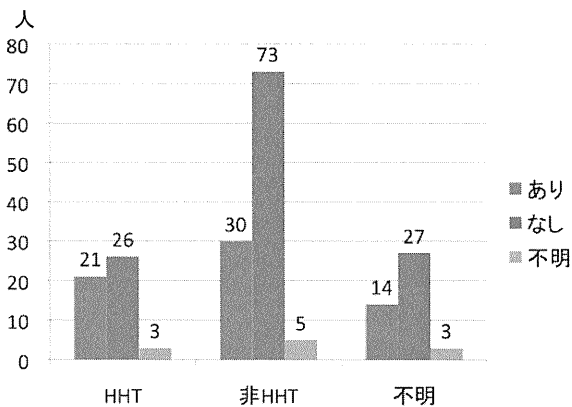


図 54 低酸素血症の合併

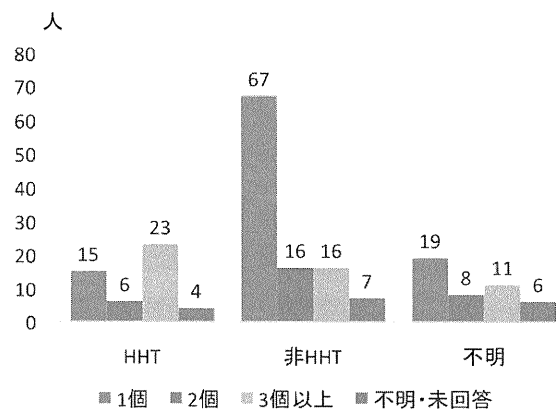


図 55 PAVM の数

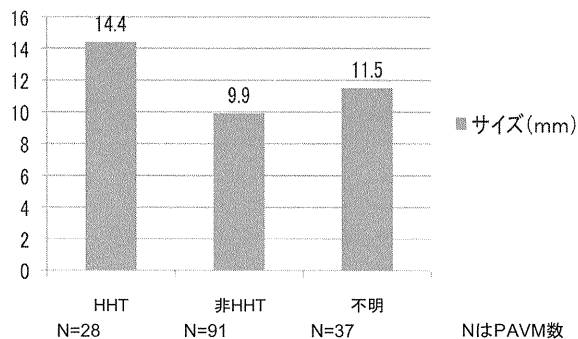


図 56 PAVM の大きさ

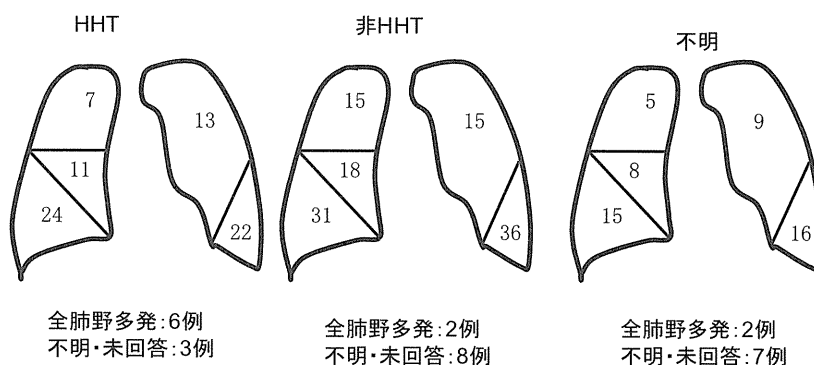


図 57 PAVM の分布

b. 合併症

鼻出血の合併 (図 50), 多臓器 AVM あるいは末梢血管拡張の合併 (図 51), 多臓器 AVM あるいは末梢血管拡張の部位 (図 52), 奇異性脳膿瘍の合併 (図 53), 低酸素血症の合併 (図 54) の結果をそれぞれ示す。

c. PAVM の特徴と治療方法

PAVM の数 (図 55), PAVM の大きさ (図 56), PAVM の分布 (図 57), 治療方法 (図 58) をそれぞれ示す。

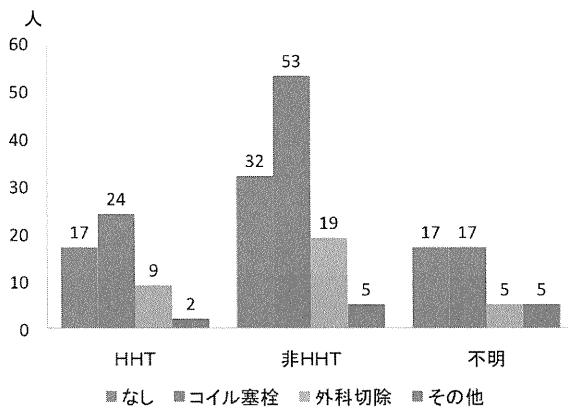


図 58 治療方法

その他には、HHT: エストロゲン製剤 1 例, HOT 1 例, 非 HHT: 他院紹介 5 例, 不明: 他院紹介 3 例, 不明 2 例

資料

厚生労働省科学研究補助金研究報告書（難治性疾患克服事業）「遺伝性出血性末梢血管拡張症（オスラー病）に関する遺伝疫学的検討と診療ガイドラインの作成」平成 22 年度 総括・分担研究報告書, 研究代表者 塩谷隆信, 平成 23 年 5 月.

〈佐藤一洋 佐野正明 塩谷隆信〉

4

内臓動静脈奇形

B. 肝臓

1) 血管造影・CT

POINTS

- 本症における肝血管性病変は、末梢血管拡張症と肝動脈，門脈，肝静脈間の短絡からなり，MDCTにより診断可能である。
- 多くは無症状であるが，短絡の存在と短絡量に依存した症状の発現がみられる。
- 肝血管性病変の症状は自然に増悪・寛解を繰り返すことが多い。
- 内科的治療が基本である。肝動脈塞栓術は重篤な合併症を引き起こす頻度が高く，注意が必要である。

遺伝性出血性末梢血管拡張症 hereditary hemorrhagic telangiectasia (以下 HHT) 症例の 8~31% に肝血管性病変がみられる^{1,2)}。近年の MDCT を使った報告では 74% の症例で肝血管性病変が存在する³⁾。この稿では肝血管性病変の病理学的所見，画像所見，主な臨床症状とその治療法について述べる。

大きな短絡（動静脈奇形）となる。機能的には 3 つの短絡のうち 1 つの短絡が優位となる⁶⁾。血管造影所見を検討した臨床例の報告では，若年者は末梢血管拡張症が主たる所見で，加齢とともに種々の短絡がみられる（表 18）⁷⁾。肝動脈は肝内の短絡を介する血流量が増加するにつれ拡張する⁷⁾。

1. 病理学的所見

HHT の血管性病変でまずみられるのが末梢血管拡張症であり，HHT の特徴的な所見である。末梢血管拡張は後毛細管静脈の拡張である。病変の進行に伴い，拡張した後毛細管静脈は細動脈と毛細血管床を介さず直接吻合（短絡）するようになる⁴⁾。この短絡は肝動脈と肝静脈間，肝動脈と門脈間，門脈と肝静脈間に見られる⁵⁾。さらに病変が進行すると画像でとらえられ

2. 画像所見

肝血管性病変の画像所見は末梢血管拡張症と肝動脈，肝静脈，門脈の間の短絡からなる。血管造影が最も確実な HHT の肝血管性病変の画像診断法である。末梢血管拡張症は血管造影にて動脈相後期から静脈相にかけて粒状の造影剤貯留像としてみられる（図 59）。肝動脈と門脈および肝静脈との短絡は肝動脈造影で，門脈・肝静脈間の短絡は経動脈性門脈造影で容易に観

表 18 血管造影からみた HHT の肝血管性病変⁷⁾

症例 (年齢/性別)	肝動脈径 (mm)	びまん性 末梢血管拡張	短絡		
			肝動脈・ 肝静脈	肝動脈・ 門脈	門脈・ 肝静脈
26/男性	4.1	+			
27/女性	5.7	+	+		
28/男性	6.3	+	+		
58/女性	12.6			+	+
65/男性	13		+	+	+
75/女性	13.1			+	+
76/男性	15			+	+

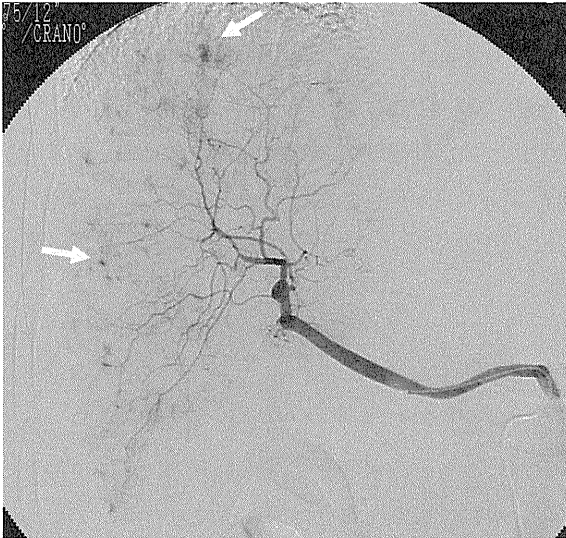


図 59 選択的肝動脈造影動脈相後期

末梢血管拡張症は動脈相から肝内に多数の造影剤貯留像として観察される (矢印)。

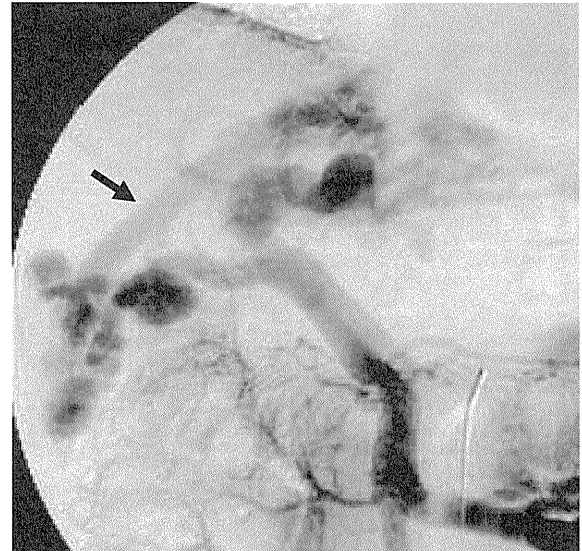


図 61 経動脈性門脈造影

門脈・肝静脈短絡により肝静脈が描出される (矢印: 肝静脈)。

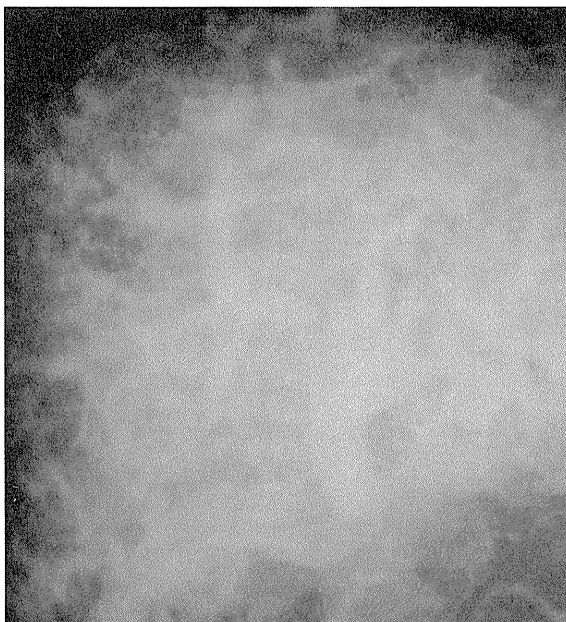


図 60 選択的肝動脈造影静脈相

肝動脈・門脈短絡により肝内門脈枝が描出される。

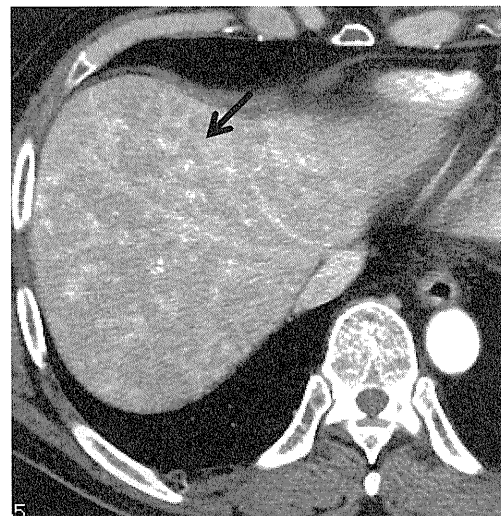


図 62 動脈相 CT 画像

末梢血管拡張症は肝内の小さな斑状の濃度上昇域として観察される。肝動・静脈短絡により肝静脈の早期描出がみられる。また、肝動脈・門脈短絡による肝内門脈枝描出も認める (矢印)。

察できる (図 60, 61)。

現在は MDCT (多列検出器 CT) による早期動脈相を含めた多相性の造影 CT にて肝血管性病変の評価は可能となっている³⁾。CT 上、末梢血管拡張は動脈相で肝内の 1 cm 以下の斑状の濃染域として描出される (図 62)³⁾。肝動脈と門脈との短絡は早期動脈相で門脈本幹の造影効果を認めない時点での門脈分枝造影効果

と動脈相での区域性の肝実質濃染として描出される (図 62)。肝実質濃染は門脈相ない平行相では肝実質と等濃度となる。肝動・静脈間の短絡は動脈相で肝静脈の造影効果として認識される (図 62)^{3,8,9)}。しかし、撮像タイミングの問題もあり、評価が困難な場合もある。早期の肝動脈と門脈、肝静脈との短絡の存在はドプラエコーがより診断効果が高いと考えられる¹⁰⁾。門脈・



図 63 動脈相 CT 画像

大きな門脈・肝静脈短絡は CT でも指摘可能である (黒矢印: 門脈, 白矢印: 肝静脈)。

肝静脈間の短絡も大きなものは直接描出可能である (図 63)。また、肝動脈と肝静脈、門脈間の短絡量が増えるにつれ、肝動脈の拡張もみられる。

まれではあるが、肝実質性病変もみられる。肝内血管短絡による門脈血流の変化が要因と思われ、結節性過形成と限局性結節性過形成がみられる。

3. 主な臨床症状

HHT の肝血管性病変の多くは無症状であるが、8%前後の頻度で症状を呈するといわれる³⁾。30 歳前後から出現し、女性に多くみられる。症状は肝内の短絡の存在と短絡量に依存するものと考えられ、高拍出性心不全、門脈圧亢進症、胆道系病変による症状が主なものである。これらの症状は増悪と寛解を自然に繰り返すことを知っておくことは重要である。以下は Garcia-Tsao⁶⁾ と Buscarini¹¹⁾ らの報告を簡潔にしたものである。

a. 高拍出性心不全

最もよくみられる症状で、女性に多い。報告例の平均年齢は 52 歳で、心拍出量は 8 l/min 以上である。運動時の息切れ、呼吸困難や腹水や体幹浮腫などが主な症状である。右上腹部にスリルや血管雑音などが観察される。肝動・静脈間の短絡が原因である。

b. 門脈圧亢進症

次に多くみられる症状で、性差はない。報告例の平均年齢は 62 歳である。腹水が主な症状であり、食道などに生じた静脈瘤による出血もみられる。多くは肝動脈と門脈間の短絡が原因となる。また、過形成性結節による末梢レベルでの肝静脈圧排によることもある。

c. 胆道系病変

頻度は高くないが、予後は不良とされる。ほとんどは女性にみられ、報告例の平均年齢は 39 歳である。症状は胆管炎に似ており、検査所見でも ALP、ビリルビン値上昇など胆汁うっ滞による所見である。短絡による胆管壁虚血・壊死が原因であり、肝内胆管の限局性拡張や傍胆管嚢胞がみられる。

d. その他

まれではあるが、肝性脳症や上腸間膜動脈血流のステール現象による腹部アンギーナなどの症状も報告されている。

4. 治療

症状がない肝血管性病変の治療は不要である。症状を呈する場合は個々の症状に応じた治療、肝内短絡量減少を目指す治療と肝移植に分けられる。いかなる治療を選択にしても、HHT 症例の肝血管性病変による症状は自然に寛解することがあることを知っておかなければならない。

a. 個々の症状に応じた治療

高拍出性心不全症例の多くは内科的治療にて症状が軽快する。塩分制限、利尿薬、降圧薬や抗不整脈薬、強心薬、貧血の是正などが行われる。門脈圧亢進症に対しては肝硬変に準じた治療が行われる。胆道系病変には鎮痛剤や抗生剤投与が行われる。

b. 短絡量減少を目指す治療

内科的治療に抵抗性の高拍出性心不全に対する治療として肝動脈塞栓術の有用性が報告されている¹²⁾。しかし、効果は一時的で 27% の症例で重篤な合併症が発生し、致死率 10% である⁶⁾。とりわけ、門脈と肝静脈

との短絡のある症例では肝梗塞が発生する傾向が高く肝動脈塞栓術は施行すべきでないといわれている^{6,13-15)}。肝動脈塞栓術を施行する場合は門脈と肝静脈の短絡がないことを確認し、患者に重篤な合併症の頻度が高いことを十分説明したうえで施行すべきと考えられる。

c. 肝移植

本邦では容易にできるものではないが、唯一根治が可能な治療である。高拍出性心不全症例では良好な成績が報告されているが、胆道系病変や門脈圧亢進症を認める症例では致死率がそれぞれ17%、40%と高い⁶⁾。また、移植を行う適正な時期に関する基準はないが、内科的治療によっても症状が進行する場合のみ施行すべきとされる。

■文献

- 1) Plauchu H, de Chadarevian JP, Bideau A, et al. Age-related clinical profile of hereditary hemorrhagic telangiectasia in an epidemiologically recruited population. *Am J Med Genet.* 1989; 32: 291-7.
- 2) Reilly PJ, Nostrant TT. Clinical manifestations of hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Am J Gastroenterol.* 1984; 79: 363-7.
- 3) Ianora AAS, Memeo M, Sabba C, et al. Hereditary hemorrhagic telangiectasia: multi-detector row helical CT assessment of hepatic involvement. *Radiology.* 2004; 230: 250-9.
- 4) Guttmacher AE, Marchuk DA, White RI. Hereditary hemorrhagic telangiectasia. *N Engl J Med.* 1995; 333: 918-24.
- 5) Wanless IR, Gryfe A. Nodular transformation of the liver in hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Arch Pathol Lab Med.* 1986; 110: 1219-23.
- 6) Garcia-Tsao G. Liver involvement in hereditary hemorrhagic telangiectasia (HHT). *J Hepatol.* 2007; 46: 499-500.
- 7) Hashimoto M, Tate E, Nishii T, et al. Angiography of hepatic vascular malformations associated with hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 2003; 26: 177-80.
- 8) Lane MJ, Jeffrey RB, Katz DS. Spontaneous intrahepatic vascular shunts. *Am J Roentgenol.* 2000; 174: 125-31.
- 9) Torabi M, Hosseinzadeh K, Federal MP. CT of non-neoplastic hepatic vascular and perfusion disorders. *Radiographics.* 2008; 28: 1967-82.
- 10) Naganuma H, Ishida H, Niizawa M, et al. Hepatic involvement in Osler-Weber-Rendu disease: findings on pulsed and color Doppler sonography. *Am J Roentgenol.* 1995; 165: 1421-5.
- 11) Buscarini E, Plauchu H, Garcia-Tsao G, et al. Liver involvement in hereditary hemorrhagic telangiectasia: consensus recommendations. *Liver International.* 2006; 26: 1040-6.
- 12) Chavan A, Galanski M, Wagner S, et al. Hereditary hemorrhagic telangiectasia: effective protocol for embolization of hepatic vascular malformations—experience in five patients. *Radiology.* 1998; 209: 735-9.
- 13) Jackson JE. Hepatic vascular malformations in hereditary hemorrhagic telangiectasia: treatment with embolization. *Radiology.* 1999; 213: 927-8.
- 14) Miller FJ, Whiting JH, Korzenik JR, et al. Caution with use of hepatic embolization in the treatment of hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Radiology.* 1999; 213: 928.
- 15) Hashimoto M, Akabane Y, Heianna J, et al. Hepatic infarction following selective hepatic embolization with microcoils for iatrogenic biliary hemorrhage. *Hepatol Res.* 2004; 30: 42-50.

〈橋本 学〉

4

内臓動静脈奇形

B. 肝臓

2) 腹部エコー

POINTS

- 腹部実質臓器中障害を受けるのはほとんど肝に限定される。
- 肝の障害は多彩であるが、脈管短絡と肝動脈瘤が主である。
- 脈管短絡は、a) 動脈-門脈、b) 動脈-静脈、c) 門脈-静脈、d) 静脈-静脈、間であり、短絡が発達すると、a) 門脈圧亢進、b) 心不全、c) 肝不全、を引き起こす。
- 肝動脈瘤は、肝内外を問わず発症し、破裂に至ることもある。
- 肝障害の有無は、肺や粘膜病変の有無や程度と比例しない。
- 超音波カラードブラ検査が肝障害の診断の中心であり、Osler-Weber-Rendu 病例に対しては定期的に超音波カラードブラ検査を施行することが望ましい。

Osler-Weber-Rendu 病（以下、Osler 病）の腹部病変に関しては、まず肝の組織学的所見を中心に多くの検討がなされてきた。それによると、まず末梢レベルでの血管内腔の拡張や動静脈短絡が生じ、これが次第に顕在化する、と考えられている。画像診断で見られるマクロの所見は、1) 肝動脈瘤形成と、2) 肝内血管の短絡が主で、前者は血管壁の弾性線維の変性、後者は末梢レベルの小短絡が発展したもの、と考えられる。肝実質そのものには線維化や細胞浸潤などはほとんど生じず、Osler 病が進行性の実質障害をきたすことはなく、画像所見や臨床症状は血管病変に起因する^{6,10)}。Osler 病に伴う腹部病変としては、消化管粘膜の毛細管拡張が出血源となりえることから注目されたが、実質臓器の所見が臨床的に注目されたのは画像診断、特に超音波ドブラ法が普及した 1980 年以降である。以下に、各臓器における画像、特に超音波所見を述べる^{1-5,7-9)}。

1. 肝

肝動脈が異常に拡張を示す。この所見は Osler 病の約 3 割に出現するとされている。その特徴として、1) 肝内外の肝動脈が拡張する、2) 拡張動脈は著明な屈曲蛇行を示す、3) 肝動脈内の血流速度が増加している、ことがあげられる（図 64）。

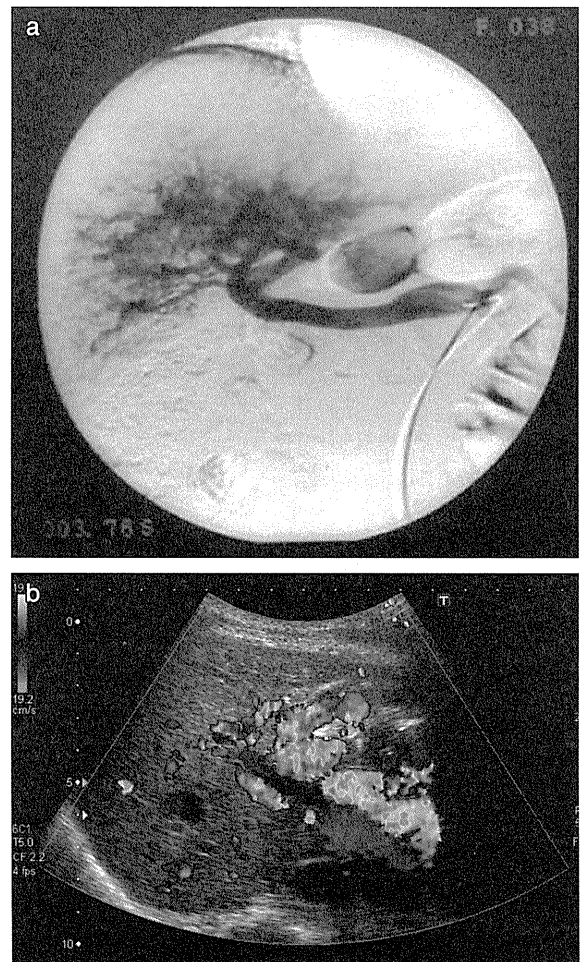


図 64 Osler 病の肝動脈

a: 血管造影, b: カラードブラ所見
肝動脈全体が拡張蛇行している。

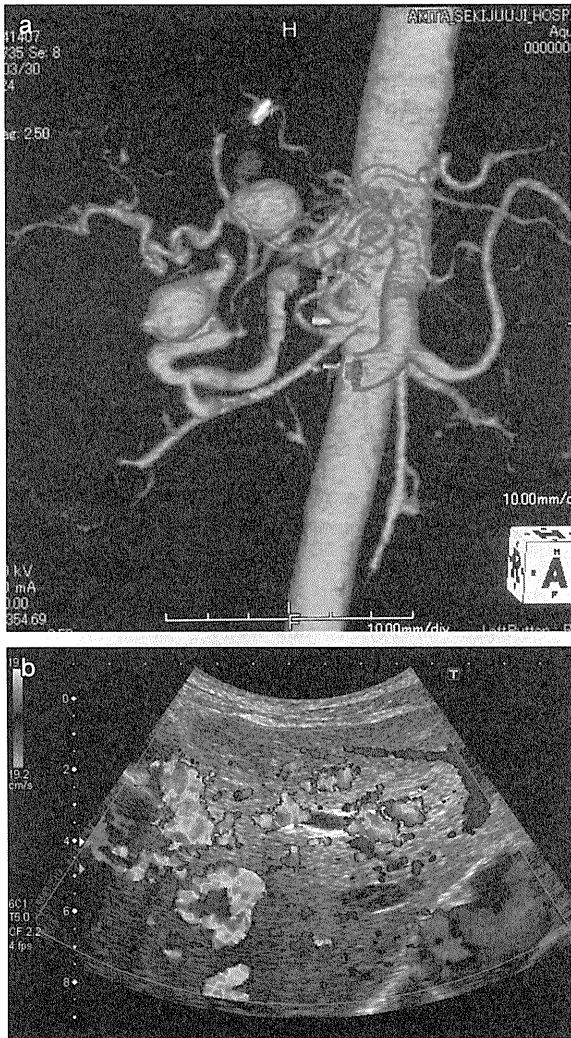


図 65 Osler 病の肝動脈瘤

a: MR angio, b: カラー Doppler 所見
右肝動脈に動脈瘤がみられる。

ちなみに血管径に関しては、肝門部で約 6 mm と正常例の約 2 倍程度となっており、血流速度に関しては、肝門部レベルで約 150 m/sec で正常人の約 3 倍の流速となっているが、抵抗係数 resistive index [(最高流速 - 最低流速) / 最高流速] に関しては正常人と同様で 0.7~0.8 程度である。また、4) 数パーセント程度に肝動脈瘤がみられる (図 65)。なお、動脈瘤の局在部位は固有肝動脈や右肝動脈などと一定しない。まれに動脈瘤の破裂をきたすこともあり塞栓術の適応となる。ところで、Osler 病の肝血管異常で特筆すべきは、5) 正確な発生頻度は不明であるが、かなり高頻度にみられる各種短絡の形成で、肝内の 3 血管 (動脈、門脈、肝静脈) 間のあらゆる組み合わせの短絡 (動脈-門脈短絡、動脈-肝静脈短絡、門脈-肝静脈短絡、肝静

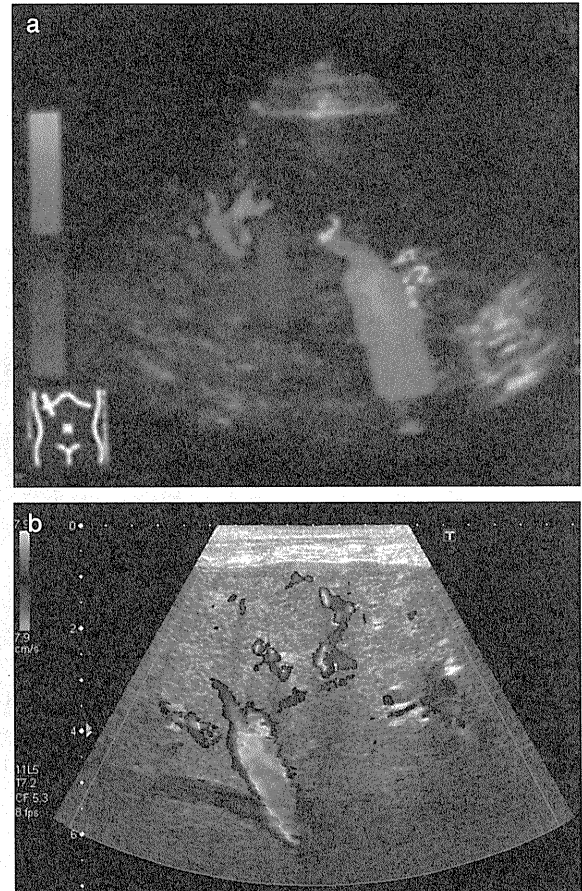


図 66 Osler 病の肝内短絡のカラー Doppler 所見

a: 門脈肝静脈短絡, b: 肝辺縁の多数の小短絡

脈-肝静脈短絡、など) が報告されている (図 66)。なお同一個体が多数の異種短絡を有することもある¹⁻¹¹⁾。実際には、画質の向上した最近の超音波で肝辺縁を詳細に観察すると、Osler 病例では、高率にやがて顕在化していく多様な小短絡がすでに多数存在していることが理解できる。ところで、これらの短絡の臨床像であるが、これは肝硬変などの他の成因によるものと変わらず、動脈-門脈短絡は進行すると門脈圧亢進を、動脈-肝静脈短絡は進行すると心不全を、門脈-肝静脈短絡は進行すると肝不全を引き起こすため、症状と病態を考慮した治療が求められる^{6,10,12)}。なお、肝内の血管異常の程度は他の臓器の異常 (鼻粘膜毛細血管拡張、胃粘膜毛細血管拡張、肺動脈-静脈短絡、など) の程度とはまったく無関係である。その意味でも、Osler 病の全例に対し、まず行う腹部検査は超音波検査であり、これで腹部全体を詳細にチェックすべきである。肝実質に関しては、Osler 病が肝線維化をきたすといった初期の報告は誤りで、それは頻回

の輸血による肝炎ウイルス感染によるものであったと現在は考えられている。また肝腫瘍の合併の報告も、血管異常の延長である血管腫と、肝内循環異常に起因する結節性変化に限定されている^{6,10,13,14)}。

2. 胆道系, 膈, 脾

胆道系, 膈, 脾などのその他の腹部実質臓器に関しては, 肝に比して異常所見はきわめて軽微で, 膈周囲の血管系に動静脈奇形 (AV malformation) が起きるといふ報告もあるが, きわめてまれであり, 因果関係は確立したものではない¹⁵⁾。

まとめ

Osler 病における腹部の実質臓器の異常はほとんど肝に限局するが, その異常はきわめて多彩であるため超音波検査による詳細な観察が求められ, 得られた所見をもとにした治療が患者の QOL を向上させ予後を改善するものと思われる。

■文献

- 1) Naganuma H, Ishida H, Niizawa M, et al. Hepatic involvement in Osler-Weber-Rendu disease: Findings on pulsed Doppler and color Doppler sonography. *AJR*. 1995; 165: 1421-6.
- 2) Naganuma H, Ishida H, Konno K, et al. Intrahepatic venous collaterals. *Abdom Imaging*. 1998; 23: 166-70.
- 3) Lin CC, Wu JC, Chou YH, et al. Hereditary hemorrhagic telangiectasia: demonstration of portsystemic venous shunts using power Doppler sonography and sonographically guided percutaneous transhepatic portovenography. *J Clin Ultrasound*. 2001; 29: 517-22.
- 4) Matsuo M, Kanematsu M, Kato H, et al. Osler-Weber-Rendu disease: Visualizing portvenous shunting with three-dimensional sonography. *AJR*. 2001; 176: 919-20.
- 5) Bodner G, Peer S, Karner M, et al. Nontumoral vascular malformations in the liver: color Doppler ultrasonographic findings. *J Ultrasound Med*. 2002; 21: 187-92.
- 6) Larson AM. Liver disease in hereditary hemorrhagic telangiectasia. *J Clin Gastroenterol*. 2003; 36: 149-58.
- 7) Matsumoto S, Mori H, Yamada Y, et al. Intrahepatic porto-hepatic venous shunts in Rendu-Osler-Weber disease: imaging demonstration. *Eur Radiol*. 2004; 14: 592-6.
- 8) Ianora AA, Memeo M, Sabba C, et al. Hereditary hemorrhagic telangiectasia: multi-detector row helical CT assessment of hepatic involvement. *Radiology*. 2004; 230: 250-4.
- 9) Miyabe A, Akita S, Kitajima Y, et al. Rupture of hepatic aneurysm complicating hereditary hemorrhagic telangiectasia. (Osler-Weber-Rendu disease) for which hepatic arterial coil embolization was effective. *J Gastroenterol Hepatol*. 2007; 22: 2352-7.
- 10) Garcia-Tsao G. Liver involvement in hereditary hemorrhagic telangiectasia (HHT). *J Hepatol*. 2007; 46: 499-507.
- 11) Bertolotto M, Martinoli C, Migaletto V, et al. Color Doppler sonography of intrahepatic vascular shunts. *J Clin Ultrasound*. 2008; 36: 527-38.
- 12) Blum A, Shalabi R. Osler-Weber-Rendu disease and heart failure. *Clinical Medicine: Cardiology*. 2009; 3: 121-3.
- 13) Vilgrain V, Lebec D. Images in hepatology. Hepatic pseudotumor in Osler-Weber-Rendu disease. *J Hepatol*. 1998; 28: 343-5.
- 14) Selmeier M, Cidinsky K, Ell C, et al. Liver hemangiomas in Osler's disease. *Dtsch Med Wochenschr*. 1993; 119: 1015-8.
- 15) Lande A, Bedford A, Schechter LS. The spectrum of angiographic findings in Osler-Weber-Rendu disease. *Angiology*. 1976; 27: 223-40.

〈石田秀明 長沼裕子 大山葉子〉

4

内臓動静脈奇形 C. 脊 髄

POINTS

- HHT に関連する脊髄血管奇形には、静脈瘤を伴った動静脈瘻が多い。
- 脊髄内の出血やくも膜下出血による急性の対麻痺や四肢麻痺、痛みを伴った脊髄症状、ゆっくり進行する運動・知覚障害や歩行障害で発症する。
- 脊髄血管奇形の診断は、MR 検査をまず行い、次に gold standard であるカテーテルによる血管撮影を行い、血管構築を理解する。

1. 脊髄血管奇形の診断

脊髄血管奇形の診断は、MR 検査、CT angiography、カテーテルによる血管撮影で行われる。MR 検査と CT angiography で病変の存在診断や大まかな血管構築がわかる場合もあるが、最終的な診断には、gold standard であるカテーテルによる血管撮影が必要である。カテーテルによる血管撮影は、栄養動脈になる可能性のある肋間動脈や腰動脈などを MR 検査などの結果から類推して選択し、すべての動脈の選択的撮影を行う必要はない。MR 検査では、出血、浮腫、flow void を伴う血管構築、特に拡張した静脈瘤や蛇行した perimedullary vein などが認められる。カテーテルによる血管撮影では、radiculomedullary artery, radiculopial artery を確認し、direct AV shunt なのか、nidus があるのか、関与する動脈、導出静脈、動脈瘤や静脈瘤の存在を確認する。

2. 脊髄血管奇形の分類

脊髄の血管奇形は、その血管構築から、硬膜動静脈瘻 (type I)、髄内動静脈奇形 intramedullary AVM (type II, III)、傍髄質動静脈瘻 perimedullary AVF (type IV)、傍脊椎・硬膜外動静脈瘻・奇形, complex spinal AVM に分類される^{1,2)}。HHT に関連する脊髄血管病変は、硬膜内に存在する動静脈瘻 arteriovenous fistula と動静脈奇形 arteriovenous malformation であ

る。動静脈瘻と動静脈奇形の違いは、nidus (ナイダス、動脈と静脈の間に介在する異常血管構築) が存在するかどうかであるが、臨床的や画像診断のうえでそれらを鑑別することは困難な場合もある。脊髄での毛細血管拡張病変 telangiectasia の報告はほとんどない。動静脈奇形が、その後に動静脈瘻の血管構築になったり、その逆で動静脈瘻が動静脈奇形の構築になることは決してない。しかし、血管奇形の血管構築は、static ではなく、時間とともに大きさ・血流などが変化する dynamic な病変ととられるべきである。同じ血管構築に見える血管奇形であっても、その原因となる因子は種々あり、その1つにエンドグリンや ALK-1 gene に異常の認められる HHT があると考えられる³⁾。

3. 動静脈瘻 arteriovenous fistula

Djindjian らが 1977 年に intradural, extramedullary AVF として報告し⁴⁾、Heros らが 1986 年に type IV の脊髄動静脈奇形として報告した⁵⁾。nidus を伴わない動静脈シャントであり、傍髄質動静脈瘻 perimedullary arteriovenous fistula ともいわれる。脊髄の表面に AV shunt をつくり、まれにくも膜下出血を起こすが、多くは venous hypertension によって進行性の脊髄症状を呈する。動脈瘤や静脈瘤を形成し、脊髄を圧迫して症状を出す場合もある。性差はなく 20~30 歳代に好発する。脊髄円錐や馬尾に好発するが、他の部位にも起こる。前脊髄動脈 anterior spinal artery が関与することが多い⁶⁾。Speztler らはシャントの大きさと血流動

態によって、動静脈瘻をさらに type IVa, IVb, IVc と分類した。IVa: 小さな fistula で、1 本の栄養血管（多くの場合は Adamkiewicz 動脈: 腰膨大部を栄養する脊髄動脈）が関与し、病変は脊髄の腹側にある。IVb: 拡張した複数の栄養血管（前脊髄動脈と 1 または 2 本の後脊髄動脈）が関与し、静脈側の拡張を伴う。IVc: 多数の栄養血管と巨大な静脈瘤との間の AV fistula で構成され、シャントは 1 カ所で頸髄や胸髄に認められる⁷⁾。急激な症状やくも膜下出血は、type IVb, IVc にのみ起こる。脊髄血管造影で、髄内動静脈奇形の nidus

のようにみえても、脊髄の本来の血管構築に angiogenesis, angioectasia, venous congestion が認められる単純な動静脈瘻の場合があり、これらの鑑別は困難である。動静脈瘻の治療により nidus が存在するような所見はなくなる場合もある。

4. 動静脈奇形 arteriovenous malformation

髄内に nidus を伴う動静脈奇形であり、以前の分類では、type II は glomus type, type III は juvenile type

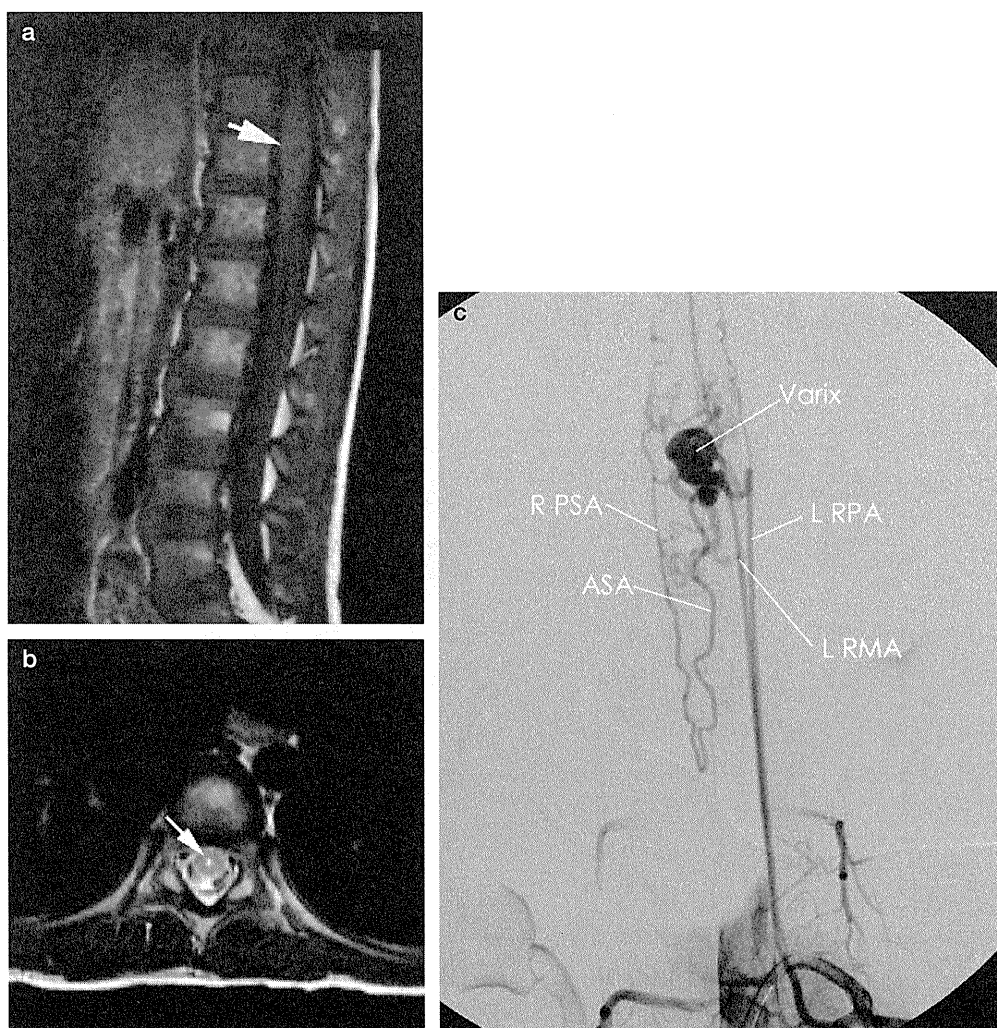


図 67 症例 1 (HHT 症例)

6 歳男児。2 歳時に出血による左下肢麻痺で発症したが、保存的に加療された。6 歳時、再出血による右下肢麻痺で来院した。

- a: T1 強調 MR 画像。脊髄の腫大と亜急性期の low intensity の血腫が認められる。
- b: T2 強調 MR 画像。high intensity を示す血腫が腫大した脊髄内に認められる。
- c: 左第 2 腰動脈造影の正面像。左 L2 から radiculomedullary artery (RMA) と radiculopial artery (RPA) が分岐し、後者を主な栄養動脈とした varix を伴う type IVc の動静脈瘻が認められた。ASA: anterior spinal artery, PSA: posterior spinal artery.

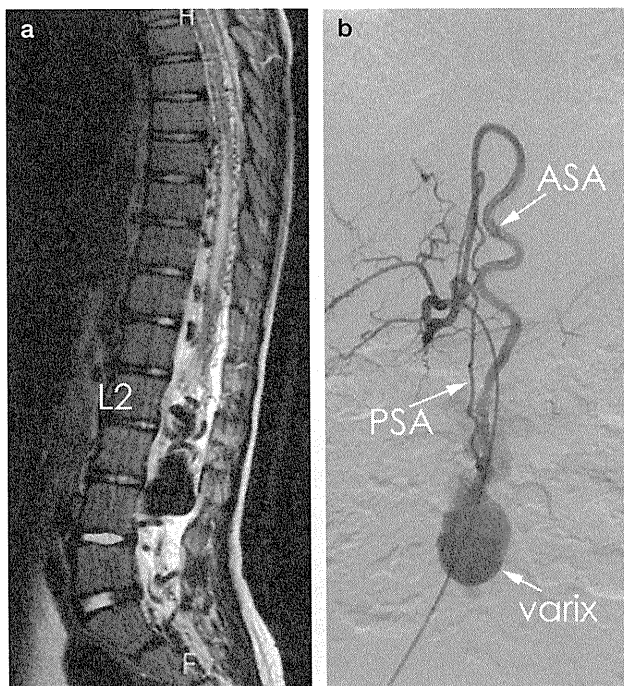


図 68 症例 2 (HHT 症例)

5 歳女児。進行性の対麻痺と排尿障害で発症。右 Th 10 の radiculomedullary を栄養動脈とする、大きな varix を伴った type IVc の動静脈瘻が認められた。

a: MR 画像。大きな varix および栄養動脈と導出静脈が認められる。

b: 右 Th 10 の選択的動脈撮影。大きな varix を伴う動静脈瘻が認められる。

ASA: anterior spinal artery, PSA: posterior spinal artery.
(北海道大学脳神経外科 浅野 剛先生の症例)

の動静脈奇形といわれた^{6,8,9}。type II は、single feeder, single drainer のことが多く、頸髄に好発し、多くは脊髓実質内の腹側にある小さな動静脈奇形であるが、脊髓表面にあるか髄内にあるかの鑑別は難しい。type III は、頻度は低く、脊髓の横断面を占める程度の大きな動静脈奇形で脊髓動脈の全部が関与することが多い。type III は、髄内病変のみならず硬膜外や脊柱管外にも動静脈奇形が存在する場合がある (Cobb syndrome)。静脈の流れる方向は、多くの場合 rostral, caudal 両方向である。硬膜動静脈瘻 (type I の血管奇形) が胸腰部に多いのに比較して、より高位に病変があることが多い。nidus は、脊髓実質内の表面または深部に存在する。若年者 (20 歳代が多い) に出血による突然の背部痛や paraparesis で発症する場合と徐々に進行する脊髓症 myelopathy で発症する場合がある。type II の方が type III よりも高頻度で出血する。非出血発症の場合は、静脈性高血圧 venous hypertension による脊髓症が起こる。動脈瘤の合併や導出静脈に静脈瘤が認められることも多く、出血と関連が深い。

5. HHT 関連の脊髓血管奇形の特徴

HHT では静脈瘤を伴った動静脈瘻が多い¹⁰⁻¹²。Rodesch らの 5 例は、すべて大きな静脈瘤を伴った動

静脈瘻 (彼らは macrofistula とよんでいる) であり、複数病変ではなく、すべて胸髄レベルの単発病変であった^{11,12}。特に HHT では小児でそのような形態で発症することが多い。このような macrofistula の場合、脊髓内の出血やくも膜下出血による急性の対麻痺や四肢麻痺、痛みを伴った脊髓症状、ゆっくり進行する運動知覚障害や歩行障害で発症する。HHT では、脳においては、AV shunt の形態をとるか、比較的小さな nidus を伴った AVM の形態をとると考えられる。

文献

- 1) 小宮山雅樹. 脊髓動静脈奇形—脊髓動静脈奇形の種類とその MRI 診断とカテーテル血管撮影の役割—. 脊椎脊髓ジャーナル. 2001; 14: 459-64.
- 2) 小宮山雅樹, 松阪康弘. 脊髓の血管解剖と血管病変. 脊椎脊髓ジャーナル. 2004; 17: 580-7.
- 3) 小宮山雅樹. 異なる視点からみた脳動静脈奇形の疾患概念. 脳神経外科ジャーナル. 2011; 20: 4-11.
- 4) Djindjian M, Djindjian R, Rey A, et al. Intradural extramedullary spinal arterio-venous malformations fed by the anterior spinal artery. Surg Neurol. 1977; 8: 85-93.
- 5) Heros RC, Debrun GM, Ojemann RG, et al. Direct spinal arteriovenous fistula: a new type of spinal AVM. J Neurosurg. 1986; 64: 134-9.
- 6) Rodesch G, Hurth M, Alvarez H, et al. Embolisation of spinal cord arteriovenous malformations with glue through the anterior spinal axis. Interventional Neuroradiol. 1997; 3: 131-43.

- 7) Mourier KL, Gobin YP, George B, et al. Intradural perimedullary arteriovenous fistulae: results of surgical and endovascular treatment in a series of 35 cases. *Neurosurgery*. 1993; 32: 885-91.
- 8) Theron J, Cosgrove R, Melanson D, et al. Spinal arteriovenous malformations: advances in therapeutic embolization. *Radiology*. 1986; 158: 163-9.
- 9) Biondi A, Merland JJ, Reizine D, et al. Embolization with particles in thoracic intramedullary arteriovenous malformations: long-term angiographic and clinical results. *Radiology*. 1990; 177: 651-8.
- 10) Mandzia JL, terBrugge KG, Faughnan NE, et al. Spinal cord arteriovenous malformations in two patients hereditary hemorrhagic telangiectasia. *Child's Nerv Syst*. 1999; 15: 80-3.
- 11) Rodesch G, Hurth M, Alvarez H, et al. Classification of spinal cord arteriovenous shunts: proposal for a reappraisal-The Bicetre experience with 155 consecutive patients treated between 1981 and 1999. *Neurosurgery*. 2002; 51: 374-80.
- 12) Rodesch G, Hurth M, Alvarez H, et al. Spinal cord intradural arteriovenous fistulae: anatomic, clinical, and therapeutic considerations in a series of 32 consecutive patients seen between 1981-2000 with emphasis on endovascular therapy. *Neurosurgery*. 2005; 57: 973-83.

〈小宮山雅樹〉

4

内臓動静脈奇形 D. 消化管病変

POINTS

- HHT の約 40%の症例に消化管病変からの出血を認め、胃、口腔内、十二指腸、大腸の頻度が多いが小腸、まれに胆道からの出血の報告もある。
- 消化管病変の本態は毛細血管拡張であり出血の際には内視鏡的治療が有効で、最近では APC (アルゴンプラズマ凝固) による治療が多く行われている。
- 消化管病変は治療後も新たな部位、あるいは治療部位の再発や再出血があり、治療後も定期的な経過観察、追加治療をしていく必要がある。

HHT の血管奇形による出血は種々の部位に起こりうるが、なかでも鼻出血と消化管出血の頻度が高く、特に臨床的に問題となりうる消化管出血は HHT 患者の約 40%の症例でみられると報告されている¹⁾。多くの症例で反復する出血を認め、それに対しアルゴンプラズマ凝固療法 (APC)²⁻⁴⁾やクリッピングによる治療法⁴⁾が報告されている。HHT 患者の消化管病変に関して、当施設にて経験した症例を提示するとともにその治療法、経過観察などを文献的考察を加えて解説する。

1. 症 例

患 者: 77 歳女性

主 訴: 繰り返す吐下血

既往歴: 40 歳頃に頻回の鼻出血を認め、経カテーテル的塞栓術や焼灼術の施行歴あり。50 歳頃に出血性胃十二指腸潰瘍による吐血にて内視鏡的止血術を数回施行。

家族歴: 父: 脳梗塞と心疾患、母: 脳出血にて死亡、弟: 脳梗塞。長男、次男および孫には特記事項なし

生活歴: 喫煙歴なし、飲酒歴なし

現病歴: 2007 年 7 月に吐下血にて他院に入院した。上部消化管内視鏡を施行して、胃十二指腸毛細血管拡張からの出血を認め、アルゴンプラズマ凝固法 (以下 APC) にて焼灼凝固治療するも止血困難とのことで当院を紹介受診した。

入院時現症: 意識清明、血圧 110/70 mmHg、体温 35.8℃、脈拍 92 回/分整、眼瞼結膜貧血あり、眼球結膜黄染なし、顔面および口腔内 (特に舌) に微小紅斑を散見。また頸部、胸腹部に多数の小紅斑を認めた。胸部: 心音純 整、呼吸音清、腹部は平坦かつ軟、グル

音良好、圧痛なし、肝脾触知せず、上肢前腕屈側と手指先端に小紅斑を散見、下肢浮腫なし

入院時検査所見 (表 19): 血液生化学検査にて RBC $363 \times 10^4 / \mu\text{l}$ 、Hb 8.1 g/dl、Hct 26.1%、ferritin 4.2 ng/ml と鉄欠乏性貧血と BUN の軽度上昇を認めた。

上部消化管内視鏡検査 (図 69): 体下部後壁に 2 カ所の数ミリ大の毛細血管拡張を認め同部位に対しアルゴンプラズマ凝固処置を施行 (設定 60W, 1l/min にて) (図 69a, b)、また体上部大弯後壁側の粘膜上にも毛細血管拡張所見を認めたため APC を施行したところ湧出性出血を生じ APC 施行するも止血困難であったためクリッピングにて止血した (図 69c, d, e)。その 1 週間後に経過観察の内視鏡を施行したところ胃内送気拡張にて同部位より再び湧出性出血を生じたためクリッピングを追加した (図 70a, b)。またその 3 日後の内視鏡再検査でも同様に同部位に出血を繰り返したためさらにクリッピングを追加した。他の毛細血管拡張部位に比べて止血が困難なため同部位の壁内を観察すべく超音波内視鏡を施行したところ出血部周囲の粘膜下層内に限局性に拡張した壁内血管の増生 (黄色矢印) と胃壁外血管の拡張所見 (赤色矢印) を認めた (図 71)。また腹部造影 CT 検査では肝内に多数の動静脈、動脈門脈短絡を認めた。頻回の鼻出血の既往や皮膚、口腔内の毛細血管拡張所見、胃毛細血管拡張と肝動静脈短絡、脳血管障害の家族歴より、遺伝性出血性毛細血管拡張症 [HHT (Rendu-Osler-Weber 病)] と診断した。出血の原因を精査するために腹部血管造影を施行した。左胃大網動脈から胃体上部の止血クリップ部付近の胃壁に流入する分岐動脈を認めたが明らかな拡張血管は造影されず、動静脈奇形 (A-V malformation) の存在は確認できなかった (図 72)。他臓器の血管病変を検索したが脳、肺には画像上明らかな異常は認めなかった。下部消化管内視鏡にて回盲部、回盲弁

表 19 入院時検査所見

生化学		血算		血液ガス	
TP	7.3 g/dl	WBC	4600/mm ³	pH	7.393
Alb	3.9 g/dl	RBC	363 × 10 ⁴ /mm ³	PO ₂	94.0 mmHg
T-Bil	0.7 mg/dl	Hb	8.1 g/dl	PcO ₂	37.5 mmHg
GOT	19 U/l	Hct	26.1%		
GPT	9 U/l	MCV	71.9 fl	感染症	
LDH	198 U/l	MCH	30.3 pg	HBs antigen	(-)
ALP	236 U/l	MCHC	34.9%	HCV antibody	(-)
BUN	18.0 mg/dl	Plt	22.2 × 10 ⁴ /mm ³		
Cr	0.71 mg/dl	Reti	1.0%		
Na	138 mEq/l				
K	4.2 mEq/l				
Cl	104 mEq/l				
T-cho	164 mg/dl				
TG	42 mg/dl				
Ferritin	4.2 ng/ml				

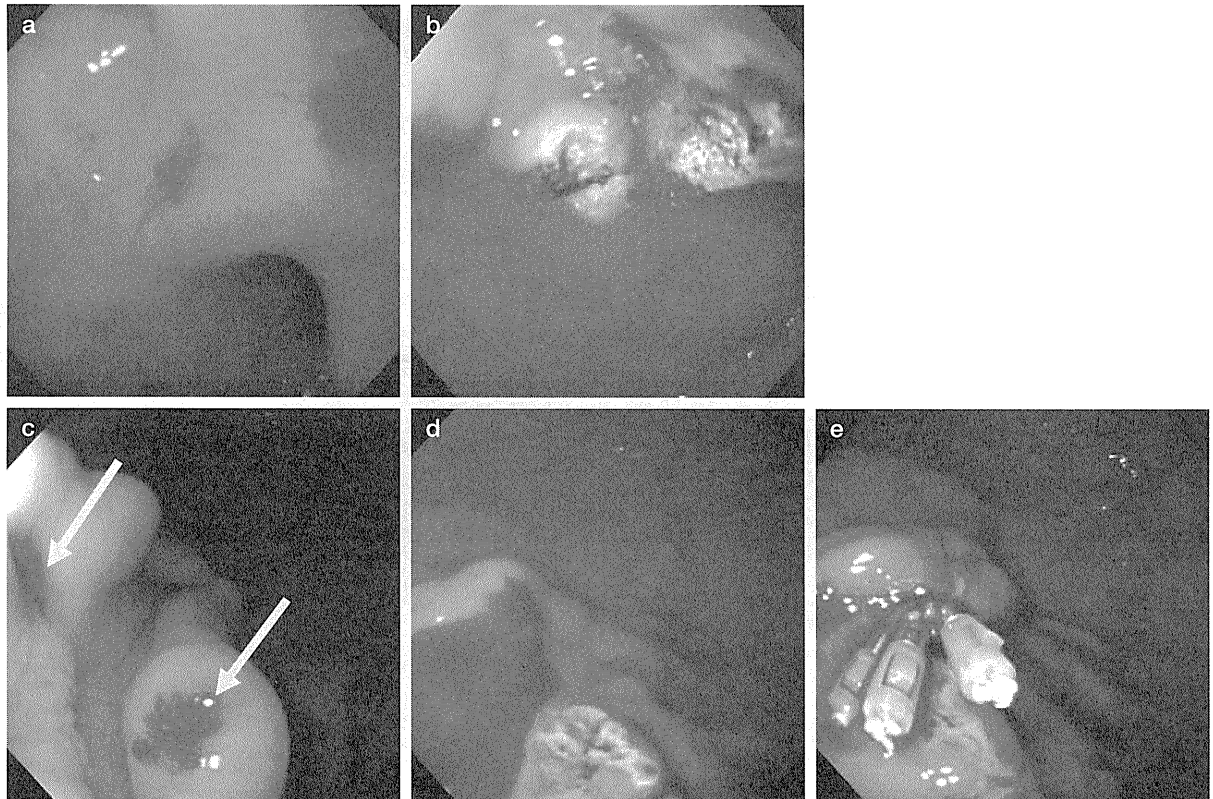


図 69 入院時内視鏡所見

a: 体上部後壁, b: 同部位 APC 後, c: 体上部大弯後壁, d: 同部位 APC 後, e: 同部位クリップ後

対側に 1 カ所毛細血管拡張所見を認めた。出血所見は認めなかったが出血予防的に粘膜下にインジゴ加生理食塩水を局注後 APC を施行した (図 73a, b, c)。以降出血症状なく経過したため退院、外来通院にて経過観察とした。退院後約 10 カ月にて再出血をきたし再入院。前回クリッピング施行部と同部位からの出血であったため再びクリップにて止血した。同一部位か

らの繰り返す出血であり、今後も再出血の可能性が高いと考え胃粘膜下層内の血管拡張部に対し内視鏡的静脈瘤結紮術 endoscopic variceal ligation (EVL) を 2 回に分けて計 6 カ所施行した (図 74a, b, c)。結紮 2 カ月後の超音波内視鏡にて結紮部位の壁内血管は消失していたが、その周囲の粘膜下層内には拡張した壁内血管の残存を認めた (図 75a, b)。EVL 施行後は退院