

胃十二指腸運動機能の推移が評価できた Celiac Artery Compression Syndromeの1例

楠 裕明¹⁾, 筒井 貴子²⁾, 塚本 真知¹⁾, 神崎 智子¹⁾, 山下 直人¹⁾,
本多 啓介¹⁾, 井上 和彦¹⁾, 岩井 美喜³⁾, 眞部 紀明³⁾, 畠 二郎³⁾,
石井 学⁴⁾, 垂水 研一⁴⁾, 鎌田 智有⁴⁾, 塩谷 昭子⁴⁾, 春間 賢⁴⁾

1) 川崎医科大学総合臨床医学, 〒701-0192 倉敷市松島577

2) 川崎医科大学附属病院臨床教育研修センター

3) 川崎医科大学検査診断学 (内視鏡・超音波)

4) 川崎医科大学消化管内科学

抄録 症例は40歳代の女性。X-1年1月頃より食後の心窩部や左季肋部の痛み、張り感などが出現し、上部消化管内視鏡検査で症状の原因となる器質的疾患は指摘されないため、X年10月当科に紹介された。体外式超音波検査(US)で腹腔動脈(CA)の呼吸性変位が指摘され、CAの血流測定を行ったところ Celiac Artery Compression Syndrome (CACS) と診断された。本人が手術を希望せず、約2年半経過した現在も上腹部症状に対して内服薬のみ投与している。症状に胃十二指腸運動機能異常の関与も疑われたため、USを用いた胃十二指腸運動機能検査は4回施行され、その結果は内服薬の選択に利用された。運動機能検査の結果は4回目が最も改善しており、同時に施行した症状問診票の腹痛症状は4回目が最も軽かった。比較的長期にわたり症状と消化管運動機能の推移を観察した CACS 症例の報告は過去になく、本稿が最初の報告である。

(平成25年8月30日受理)

キーワード : Celiac Artery Compression Syndrome (CACS), 胃十二指腸運動機能,
腹部超音波検査, 上腹部症状, 長期経過

症 例

40歳代女性。

主 訴

食後の心窩部痛, 左季肋部痛, 心窩部張り感,
体重減少 (3年間で5 kg 減少)

現病歴

X-1年1月頃より食後の心窩部痛や張り感,
左季肋部痛が出現するようになり近医を受診した。
上部消化管内視鏡検査では症状の原因とな

る器質的疾患は指摘されなかったが、ピロリ菌は陽性であったため、除菌治療が2回試みられた。しかし、除菌は2回とも失敗に終わり症状も持続したため、3次除菌目的でX年10月8日当院消化内科に紹介された。痛みは鈍痛であり、食後すぐに出現し20分~30分程度で徐々に消失することが多かったが、時には数時間持続することもあった。当初、本人は食事と腹部症状との関連性には気付いていなかった。また、3年間で約5 kgの体重減少があったが、直接腹痛とは関連しないと考え、特に気にして

別刷請求先
楠 裕明
〒701-0192 倉敷市松島577
川崎医科大学総合臨床医学

電話: 086 (462) 1111
ファックス: 086 (462) 1199
Eメール: kusunoki@med.kawasaki-m.ac.jp

表1 血液検査所見

< CBC >		< 生化学 >			
WBC	5480/ μ l	TP	7.0 g/dl	BUN	8 mg/dl
Neut	62.6%	Glu	85 mg/dl	UA	4.0 mg/dl
Eo	0.2%	T-Bil	0.5 mg/dl	Amy	73 IU/l
Baso	0.5%	ALP	166 IU/l	CRP	0.16 mg/dl
Lym	31.6%	γ -GTP	9 IU/l	< 電解質 >	
RBC	421×10^4 / μ l	LDH	197 IU/l	Na	139 mEq/l
Hb	13.3 g/dl	Alb	4.4 g/dl	K	4.4 mEq/l
Ht	38.6%	Glb	2.6 g/dl	Cl	104 mEq/l
Plt	21.7×10^4 / μ l	ChE	240 IU/l		
		ALT	11 IU/l		
		AST	18 IU/l		
		Cre	0.58 mg/dl		
		T.cho	225 mg/dl		

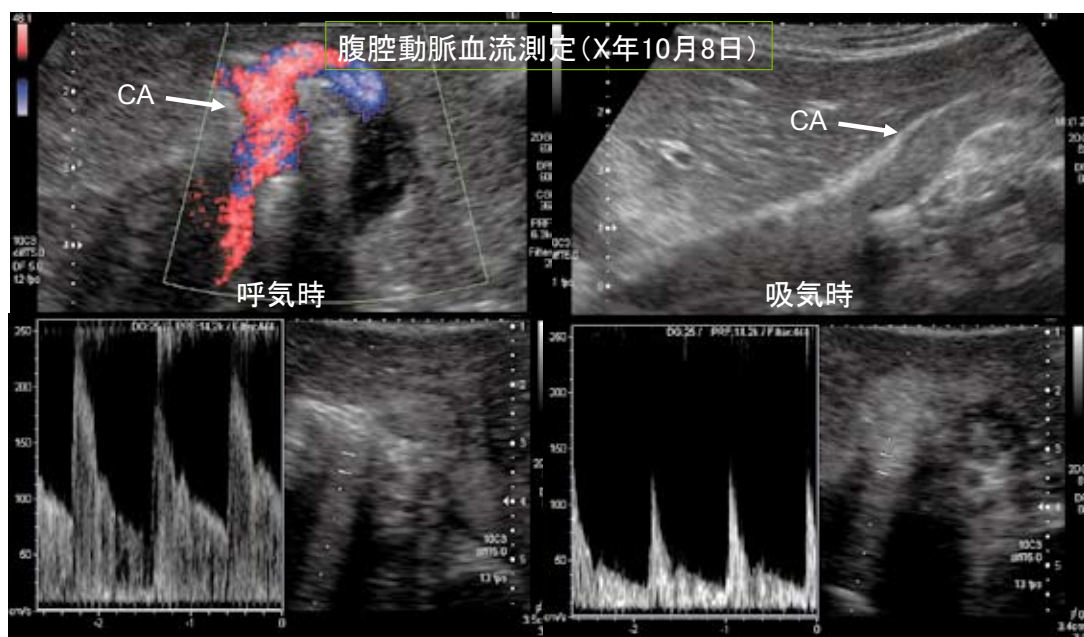


図1 腹部超音波検査で確認した腹腔動脈 (CA) の呼吸性変位とパルスドプラを用いた血流測定結果

CAは呼気で大きく頭側に変位し、根部で屈曲と内腔の狭小化が認められた。また、パルスドプラを用いた血流測定では、安静時のCA流速は200 cm/秒以上と高値であり、深吸気時に50 cm/秒以上血流の低下も認められたため、Scholbachらが提唱するCACSの診断基準を満たした。

いなかった。受診時の採血結果は表1に示すが、診察所見や血液・尿検査には、症状の原因となる明らかな異常は指摘されなかった。同日当院でも上部消化管内視鏡検査が施行されたが、食道S-C junction直上にC-0、M-1 (モントリオール基準) 程度のバレット上皮とグレードM (ロサンゼルス分類) の粘膜変化を認める以外に明らかな異常は認めず、胃粘膜の萎縮も認めなかった。腹部超音波検査 (US) では、

ルーチン検査対象臓器と消化管に明らかな異常は認めなかったが、腹腔動脈 (CA) の呼吸性変位が大きく、僅かながら呼気時に血管雑音を聴取した。そのためCeliac Artery Compression Syndrome (CACS) が疑われ、USによるCAの血流測定が実施され、安静時の流速は200 cm/秒以上と高値であり、深吸気時に50 cm/秒以上血流が低下することが確認された (図1)。そのため、Scholbachら¹⁾が提唱するUSによ

る CACS の診断基準を満たした。しかし, CA の血流低下以外に精神的要因や胃十二指腸運動機能異常なども症状の原因として考えられたため, 多方面からの精査加療目的で総合診療科に紹介となった。

既往歴

6年前に卵巣嚢腫の茎捻転で手術
現在子宮内膜症治療中

家族歴

父親に大腸癌の手術歴

飲酒歴, 喫煙歴

なし

受診時現症

身長: 156 cm, 体重: 43 kg, 体温35.8度, 眼

結膜: 貧血なし, 眼球結膜: 黄疸なし, 顔面: 特記事項なし, 口腔内: 特記事項なし, 頸部: 表在リンパ節触知せず, 甲状腺腫大なし, 胸部: 呼吸音 清, 心音 整, 雑音なし, 腹部: 平坦・軟, 腸蠕動音正常, 圧痛なし, 腫瘤や肝脾触知せず, 安静時は腹部血管雑音を聴取しなかったが, 呼気時には僅かな血管雑音を聴取した。

外来経過①

当科では, 疾患やその病態について十分に説明し, 根治のためには手術が必要であることを話したが, 本人は手術を希望しなかった。そのため, その後の約2年半の間, 当科外来で内服薬を処方して経過観察した(図2)。消化管運動機能検査異常の合併が考えられたため, 下記の方法でUSを用いた胃十二指腸運動機能検査と症状の推移を検討した。また, X+1年3月には3次除菌が施行されたが, 今回も失敗であっ

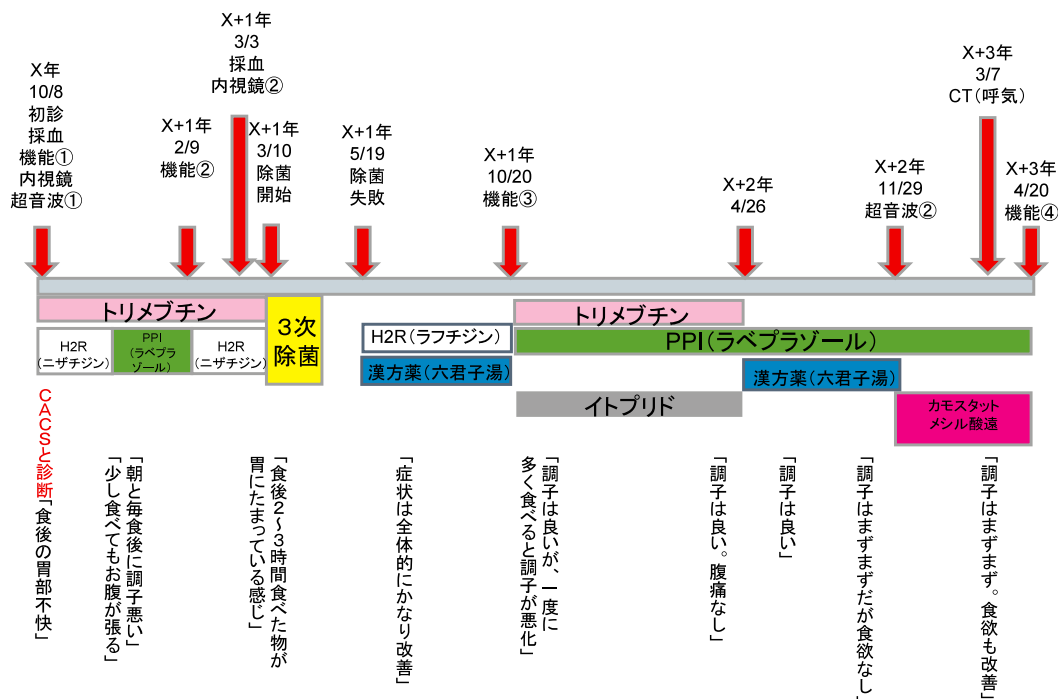


図2 検査と治療の経過と訴える症状の推移
2年半の経過観察中に, USを用いた胃十二指腸運動機能検査と問診票による症状調査は4回施行され, 上部消化管内視鏡検査は2回, 除菌とCTはそれぞれ1回ずつ実施された。内服薬による治療は消化管運動機能改善薬や漢方薬, プロトンポンプ阻害薬(PPI)やヒスタミンH2受容体拮抗薬(H2R)などの酸分泌抑制薬が中心的に投薬された。訴える腹部症状は徐々に軽微なものとなった。

た。なお、当科受診時の Self-rating Depression Scale (SDS) や State-Trait Anxiety Inventory (STAI) などの質問票では、うつや不安障害は指摘されなかった。

US を用いた胃十二指腸運動機能検査

既報^{2,3)} の如く、400 ml のコンソメスープを被検者にストローを用いて100 ml ずつ背臥位で飲用させ、近位胃の横断面積変化率から近位胃拡張能を評価。その後、座位に体位変換して、15分間の前庭部横断面積の変化率で胃排出率を、前庭部収縮率と3分間の収縮回数の積で前庭部収縮能 (Motility Index) を、カラードプラを用いて幽門輪を介して5分間に出現する逆流シグナルの大きさ (幽門輪からの到達距離) の和で十二指腸胃逆流係数 (Reflux index) を評価した。

腹痛症状の評価

胃十二指腸運動機能検査時に健康関連 QOL 尺度の評価法である Short-Form-8 (SF-8)、Gastrointestinal Symptom Rating Scale (GSRS)、およびオリジナル症状問診表を記載させ、それぞれの腹痛尺度 (得点) を求めた。腹痛尺度は痛みの強さと頻度のスコアの積を用いて、以下の如く算出した。

胃の痛みがある (強い = 3 点, 中等度 = 2 点, 弱い = 1 点, なし = 0 点) × (1 週間に 1 回 = 1 点, 1 週間に 3 ~ 4 回 = 2 点, 1 日 1 回 =

3 点, 1 日に数回 = 4 点)

外来経過②

内服薬による治療は消化管運動機能改善薬とプロトンポンプ阻害薬 (PPI) やヒスタミン H₂ 受容体拮抗薬 (H₂R) などの酸分泌抑制薬が中心的に投薬された。2年半の経過観察中に、US を用いた胃十二指腸運動機能検査は4回施行されたが、当初確認された運動機能異常は4回目にはすべての項目で正常範囲内となった (表2)。X+1年3月には再度上部消化管内視鏡検査が施行されたが、初診時の所見と同様であり、明らかな変化は見られなかった。呼気時の CT angiography は X+3年3月に施行され、明らかな CA 根部の屈曲と内腔の狭小化を認め、CACS であることが裏付けられた (図3)。健康関連 QOL 尺度の評価法である Short-Form-8 (SF-8) の腹痛尺度、GSRS の腹痛下位尺度、オリジナル症状問診表は、US を用いた機能検査と同時に計4回施行され、症状の完全な消失ではないものの4回目是最も症状が軽微であった (表2)。

考 察

CACS は1960年台に Harjola や Dunbar らによって初めて報告^{4,5)} された疾患であり、CA が根部で圧排されることにより消化管の血流障害を発生する症候群である。横隔膜脚を橋渡しする内側弓状靭帯 (median arcuate ligament) に

表2 腹部症状 (痛み) と胃十二指腸運動機能検査結果の推移

	SF-8 体の痛み 尺度 (高値ほど 良い健康状態)	GSRS 腹痛尺度	オリジナル 症状質問票 腹痛得点	近位胃 拡張能	胃排出率 (%)	前庭部運動 能 (MI)	十二指腸 胃逆流 (RI)
X 年 10月27日	30.70	2点	2点	良好	72.9 (正常)	8.67 (正常)	20 (亢進)
X+1年 2月9日				拡張不良	83.6 (正常)	9.84 (正常)	39 (亢進)
X+1年 10月20日	30.70	3点	12点	拡張不良	72.9 (正常)	8.64 (正常)	20 (亢進)
X+2年 4月18日	37.91	2点	2点	良好	79.5 (正常)	9.89 (正常)	9 (正常)

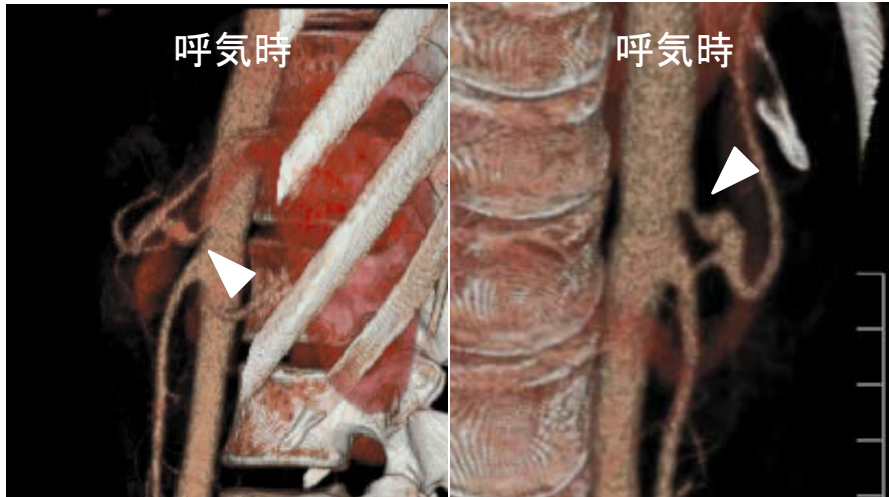


図3 CT angiography 所見 (呼気時に撮影)
呼気時の CT angiography では明らかな CA 根部の屈曲と内腔の狭小化を認め、CACS であることが確認された。

よって CA の起始部が圧排され、強い腹痛を生じる median arcuate ligament 症候群が最多であるとされている。腹痛発現の直接原因としては、CA 根部の圧排によって上腸間膜動脈から側副血行を介して腹腔動脈領域に流れる血流が増加し、上腸間膜動脈領域の血流が減少して angina を生じるとする steal phenomenon 説⁶⁾と、neurogenic stimulation が生じるためとする説⁴⁾があるが、食後30分程度で発生して食後1時間～3時間程度で消失する上腹部の痛みが特徴的な症状であることから、血流説が有力であると考えられている。診断方法としては、Scholbach らが提唱した CA の血流を用いた診断基準¹⁾ (①食後の症状がある。②血管雑音がある。③CA 基礎血流が200 cm/秒以上である。④吸気時の CA 血流が基礎血流から50 cm/秒以上低下する。)があり、われわれもこれを用いて診断した。しかし、CA の血流測定はルーチン検査では行われず、CACS などの血流障害を疑った時にのみ行われる。したがって、腹部 US ルーチン検査で CA の呼吸性変位に気付くかどうか、本疾患診断の最大のポイントとなる。また、本症例では呼気での造影 CT の施行が遅くなったが、呼気で撮影し CA 根部の蛇

行や狭小化を確認することも重要であり、吸気での撮影では所見が得られない場合が多いため⁷⁾、注意が必要である。

CACS 症例の消化管運動機能を評価した報告は少なく、Balaban ら⁸⁾ が胃排出の低下を報告しているのみである。2年半にわたり複数の消化管運動機能と腹痛症状のチェックを行い、その推移を評価した報告は本稿が最初である。また、その結果 CACS の腹痛症状の改善と胃十二指腸運動の改善が同時に見られたのは興味深く、CACS の腹痛症状には消化管運動機能異常を原因とする腹痛症状も含まれる可能性が示唆される。胃十二指腸運動機能障害の原因としては、腹痛症状によるストレスや不安によって、自律神経機能異常を来して運動機能異常に至るメカニズムが考えられるが、その証明は容易ではない。ただし、CACS の根本的な原因が、ほぼ恒常的に存在する器質的な変化であるにもかかわらず、症状の変化が認められることから、CACS の上腹部症状に CA の血流と関連しない症状が含まれることは予想され、それらがストレスによる身体化障害や内蔵知覚過敏、酸分泌亢進や自律神経機能異常を介した消化管運動機能異常などによる症状である可能性は大きい。

本症例は消化管運動機能改善薬や酸分泌抑制薬などのCA血流に直接的な作用のない薬剤によって症状は変化しており、4回目の検査で消化管運動機能異常の改善と腹痛症状の改善が同時に見られたことから、2次的な消化管運動機能異常が腹痛症状の一部に関与していたと予想される。

治療に関しては、国内外のほとんどの報告で、内側弓状韧带切離術などの外科的圧解除術が施行されており、おおむね良好な成績となっている⁹⁾。また、報告によっては、腹腔鏡を用いて日帰り手術で加療されており¹⁰⁾、国や施設によってCACSを取り巻く環境は全く異なっている。もし、本邦でもこの疾患が広く知られており、一般的に外科的治療が行われているのであれば、積極的に外科的切除を勧める必要がある。しかし、本邦では、腹痛を扱う救急科や総合診療科、消化器科医の間でもこの疾患は一般的ではなく、本邦からの報告例は欧米と比較して少ない。また、多数の手術例を有する施設自体が存在しないため、外科的治療が必要であると理解していても、実際に外科的治療が選択される例は極めて少ないと予想される。同様の状況は台湾でも見られており、14例のCACS患者のうち外科的治療が選択されたのは2例のみで、12例は保存的に治療され、1例は血管的治療がされている¹¹⁾。また、外科的治療が選択された2例も、症状が完治したのは1例であり、手術で100%症状が消失する訳ではない。したがって、外科的治療の選択には慎重な態度が必要であり、症状が消失しない可能性についても説明し、十分なインフォームドコンセントを行う必要がある¹²⁾。そのためには、まず消化管運動機能や精神的因子などを多方面から総合的に考えた内科的治療を行い、難治例や無効例にのみ手術を検討するというスタンスが最も適切であると考えられる。また、本邦ではこの疾患自体の啓発活動も十分ではなく、患者を安心して紹介できる診療体制が整備されたCACS専門施設がいくつか必要であると思われる。

結 語

比較的長期にわたり、消化管運動機能と症状の推移を観察できたCACSの1症例を経験した。本症例は器質的疾患であり、それに対する治療をしていないにもかかわらず症状は変化し、胃十二指腸運動機能の改善と腹部症状の改善が同時に認められることがあることから、CACSの腹部症状に消化管運動機能異常による症状が含まれている可能性が示唆された。食事に関連する上腹部症状を訴える患者の中に、CACSが含まれている可能性があり、本邦ではCACSの啓蒙活動やCACSの診療体制の構築が必要であると思われる。

文 献

- 1) Scholbach T: Celiac artery compression syndrome in children, adolescents, and young adults: clinical and color duplex sonographic features in a series of 59 cases. *J Ultrasound Med* 25: 299-305, 2006
- 2) Kusunoki H, Haruma K, Hata J, *et al.*: Efficacy of Rikkunshito, a traditional Japanese medicine (Kampo), in treating functional dyspepsia. *Intern Med* 49, 2195-2202, 2010
- 3) Kusunoki H, Haruma K, Manabe N, *et al.*: Therapeutic efficacy of acotiamide in patients with functional dyspepsia based on enhanced postprandial gastric accommodation and emptying: randomized controlled study evaluation by real-time ultrasonography. *Neurogastroenterol Motil* 24: 540-545, 2012
- 4) Harjola PT: A rare obstruction of the coeliac artery. Report of a case. *Ann Chir Gynaecol Fenn* 52: 547-550, 1963
- 5) Dunbar JD, Molnar W, Beman FF, Marable SA: Compression of the celiac trunk and abdominal angina. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 95: 731-744, 1965
- 6) Carey JP, Stemmer EA, Connolly JE: Median arcuate ligament syndrome. Experimental and clinical observations. *Arch Surg* 99: 441-446, 1969
- 7) 楠 裕明, 塚本 真知, 山下 直人, 他: 食事中および食後の腹痛を訴え、広義のCeliac Artery Compression Syndromeと診断した1例. *川崎医学会誌*38: 151-158, 2012.
- 8) Balaban DH, Chen J, Lin Z, Tribble CG, McCallum RW:

- Median arcuate ligament syndrome: a possible cause of idiopathic gastroparesis. *Am J Gastroenterol* 92: 519-523, 1997
- 9) Loffeld RJ, Overtoom HA, Rauwerda JA: The celiac axis compression syndrome Report of 5 cases. *Digestion* 56: 534-537, 1995
- 10) Vaziri K, Hungess ES, Pearson EG, Soper NJ: Laparoscopic treatment of celiac artery compression syndrome: case series and review of current treatment modalities. *J Gastrointest Surg* 13: 293-298, 2009
- 11) Chou JW, Lin CM, Feng CL, Ting CF, Cheng KS, Chen YF: Celiac artery compression syndrome: an experience in a single institution in Taiwan. *Gastroenterol Res Pract*: 2012
- 12) Williams S, Gillespie P, Little JM: Celiac Axis Compression Syndrome: factors predicting a favorable outcome. *Surgery* 98: 879-887, 1985

A case of Celiac Artery Compression Syndrome in which gastro-duodenal motility was sequentially assessed over the follow-up period

Hiroaki KUSUNOKI¹⁾, Takako TSUTSUI²⁾, Machi TSUKAMOTO¹⁾,
Tomoko KANZAKI¹⁾, Naohito YAMASHITA¹⁾, Keisuke HONDA¹⁾, Kazuhiko INOUE¹⁾,
Miki IWAI³⁾, Noriaki MANABE³⁾, Jiro HATA³⁾, Manabu ISHII⁴⁾, Ken-ichi TARUMI⁴⁾,
Tomoari KAMADA⁴⁾, Akiko SHIOTANI⁴⁾, Ken HARUMA⁴⁾

1) Department of General Medicine, Kawasaki Medical School,

2) Clinical Education and Training Center, Kawasaki Medical Hospital,

3) Department of Endoscopy and Ultrasound, Kawasaki Medical School,

4) Division of Gastroenterology, Kawasaki Medical School

577, Matsushima, Kurashiki, 701-0192, Japan

ABSTRACT We reported a case of a woman in her 40's with celiac artery compression syndrome (CACS). She presented a dull pain and fullness in the upper part of her abdomen during and soon after eating. Blood and urine examinations revealed no obvious abnormalities, and upper gastrointestinal endoscopy indicated no obvious causes for the symptom. After a routine abdominal ultrasound (US), measurement of celiac artery blood flow showed high blood-flow velocity, which met the US diagnostic criteria for CACS. The evidence of CACS was supported by contrast-enhanced computed tomography, showing an obvious narrowing of the celiac artery in the expiration phase. Since she did not accept surgical therapy, treatment using oral medicine continued for about 2 years and six months. Meanwhile, the US examination for evaluating gastro-duodenal motility was performed 4 times. This is the first report that showing long-term progress of the symptoms and gastro-duodenal motility in this CACS patient.

(Accepted on August 30, 2013)

**Key words : Celiac Artery Compression Syndrome (CACCS), Gastro-duodenal Motility,
Progress, Ultrasound, Upper abdominal symptoms**

Corresponding author

Hiroaki Kusunoki

Department of General Medicine, Kawasaki Medical
School 577, Matsushima, Kurashiki, 701-0192, Japan

Phone : 81 86 462 1111

Fax : 81 86 462 1199

E-mail : kusunoki@med.kawasaki-m.ac.jp