

膀胱出血による出血性ショックを来した 骨盤内動静脈奇形を有する男性の1例

宮川 拓朗¹, 北 悠希¹, 可児 尚弥², 田中 亘²
山口 貴大¹, 羽間 悠祐², 杉山 恭平², 井口 亮²
寺井 章人², 井上 幸治²

¹京都大学医学部附属病院泌尿器科, ²倉敷中央病院泌尿器科

A CASE OF PELVIC ARTERIOVENOUS MALFORMATION IN A MALE WITH MASSIVE BLADDER BLEEDING WHICH CAUSED SEVERE HEMORRHAGIC HYPOVOLEMIC SHOCK

Takuro MIYAGAWA¹, Yuki KITA¹, Naoya KANI², Wataru TANAKA²,
Takahiro YAMAGUCHI¹, Yusuke HAMA², Kyohei SUGIYAMA², Ryo IGUCHI²,
Naoto TERA² and Koji INOUE²

¹The Department of Urology, Kyoto University Graduate School of Medicine

²The Department of Urology, Kurashiki Central Hospital

Congenital arteriovenous malformation (AVM) in the male pelvis is extremely rare. We present a case of this disease with massive bladder bleeding which caused severe hemorrhagic shock. Diagnosis of pelvic AVM was confirmed by computed tomography and angiography. He was treated with transcatheter arterial embolization of the bilateral internal iliac arteries. We discuss the clinical course and the treatment for AVM in this case, and review the literature.

(Hinyokika Kiyo 71 : 17-19, 2025 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_71_1_17)

Key words : AVM, Bladder bleeding

緒 言

動静脈奇形 (arteriovenous malformation: AVM) は顔面、頸部や四肢に好発し、手術や外傷などの既往のないものは先天性動静脈奇形とされる。今回、骨盤内動静脈奇形を背景に膀胱出血による出血性ショックを来した症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 78歳, 男性

主 訴 : 肉眼的血尿

既往歴 : 心房細動, 脊髄小脳変性症, 左上葉高分化型肺腺癌, 両側大腿骨折術後

内服薬 : エドキサバン 30 mg, タルチレリン 5 mg

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 数日前から尿失禁が出現し, 前日からの肉眼的血尿を主訴に近医を受診した。膀胱タンポナーデと診断されて当科紹介となった。

来院時現症 : 血圧 106/65 mmHg, 脈拍119回/分, 呼吸回数 18 回 / 分, SpO2 97% (室内気), 体温 36.8°C。下腹部は著明に膨隆し, 腹部エコーでは, 膀胱内が 1,000 ml 程度の血腫で占拠されていた。生



Fig. 1. Cystoscopy revealed edematous bladder mucosa with extensive exudative bleeding.

理食塩水 5,000 ml で膀胱洗浄を行い, エコー上で血腫が回収されたことを確認した。しかし持続的な血尿を認めたため, 膀胱鏡で観察したところ, 膀胱粘膜は浮腫状で, 全周性に滲出性出血があった (Fig. 1)。膀胱持続灌流を開始したが30分程度で閉塞し, さらに血圧及び意識レベルが低下したため, 膀胱出血による出血性ショックと判断した。

緊急で全身麻酔下に経尿道的膀胱止血術を行った。

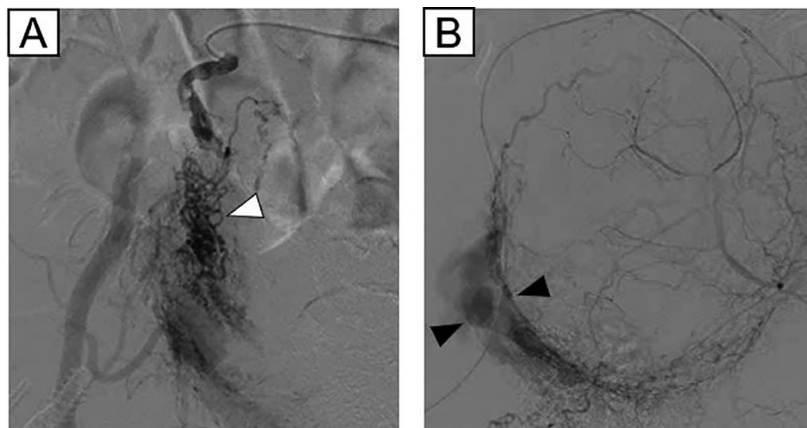


Fig. 2. (A) Right internal iliac arteriogram revealed the nidus (white arrow head). (B) Left internal iliac arteriogram revealed dilation of the draining vein (between black arrow heads).

出血する粘膜の焼灼を広範囲に行ったが、止血は得られなかった。術中に赤血球 8単位、新鮮凍結血漿 22単位、濃厚血小板 10単位の輸血を行ったが、貧血の進行と凝固機能異常 (Hb : 5.0 g/dl, Plt : $1.2 \times 10^4/\mu\text{l}$, APTT : 155.8 sec, PT-INR : 6.87) が明らかになった。術後は膀胱内圧上昇による止血効果を期待して、尿道カテーテルをクランプした。

インターベンショナル・ラジオロジーを念頭に出血源の精査目的で造影CTを撮影したところ、早期還流を示す異常血管が膀胱周囲を右側優位に取り巻いていた (Fig. 2)。加えて、膀胱後壁には活動性出血を認めた (Fig. 3)。

止血のために経カテーテル動脈塞栓術 (trans-

catheter arterial embolization : TAE) を行った。血管造影により、両側内腸骨動脈から異常血管への血流があることが明らかとなったため、救命目的に両側内腸骨動脈を塞栓した (Fig. 4)。

経尿道的膀胱止血術後からクランプしていた尿道カテーテルは TAE 後に開放し、術後10日程度で肉眼的血尿は消失した。術前に採取した血液培養からは *K. oxytoca* が検出されたため、抗菌薬を急性複雑性尿路感染症として14日間投与した。術後20日後に尿道カテーテルを抜去した。約 200 ml 程度の蓄尿が可能で、残尿は 40 ml 以下であった。

術後4週間後に造影CTを行い、両側内腸骨動脈の血流が遮断された状態が保たれていることが確認できた。一方で、異常血管群は減少していたものの残存し、その栄養血管は下腸間膜動脈の分枝である上直腸動脈だった。出血予防目的に、上直腸動脈を塞栓することが考慮されたが、両側内腸骨動脈の塞栓後であり、上直腸動脈を塞栓することで直腸が虚血に陥るリスクが危惧された。このため、上直腸動脈については温存することにした。またエドキサパンの内服については、出血リスクを考慮して中止とした。

TAE 後2カ月経過時点で再出血なく経過している。

考 察

AVM は毛細血管の介在なしに動静脈が直接短絡 (nidus) を形成した血管異常である。AVM は頭頸部で多いとされるが骨盤内、特に男性での発生は稀である¹⁾。骨盤内 AVM の症状としては下腹部の不快感や疼痛などが挙げられるが、いずれも非特異的である。泌尿器科領域では血尿、血精液症、勃起障害などが報告されている。一方で、本症例でも今回の膀胱出血を発症するまでの数十年間がそうであったように、先天性動静脈奇形を有する患者の約20%が無症状であったとの報告もある²⁾。また、無症状の成人男性における

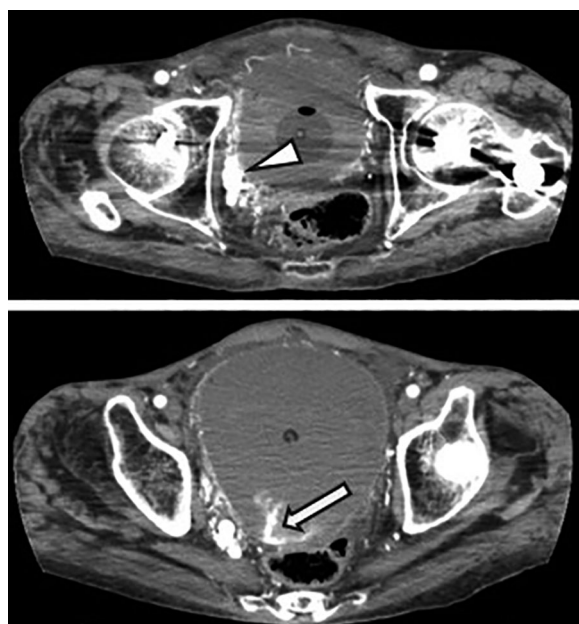


Fig. 3. CT scan shows the tortuous vessel in the right side of the pelvis (arrowhead) and active hemorrhage from the posterior wall of the bladder (arrow).

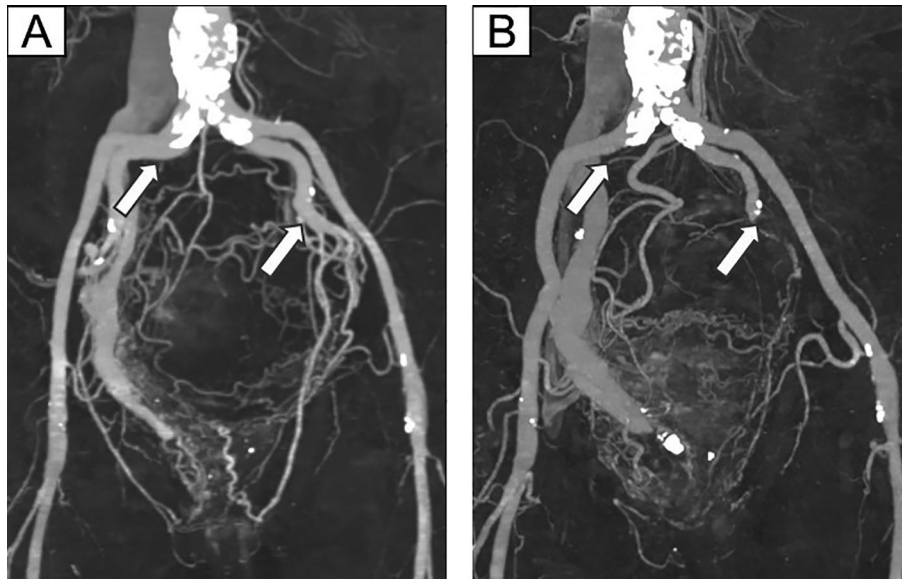


Fig. 4. 3D reconstructed CT images (A) before and (B) after TAE. Embolized at the position of the white arrow.

骨盤内先天性動静脈奇形の有病率に関する疫学的なデータはない。鰐淵ら³⁾は本邦における男性の先天性骨盤内 AVM 33症例をまとめている。この報告によると平均年齢は52.2歳であり、本症例は比較的高齢での症状出現であった。本症例では背景として心房細動に対して4年前から内服しているエドキサバンによる抗凝固作用があり、数カ月前からのパッド排尿に起因する尿路感染が契機となって、膀胱出血の症状をもって以前からあった AVM が顕在化したのだと考える。なお尿細胞診は陰性であり、尿路悪性腫瘍にともなう血尿は否定的であると考ええる。

上述の通り本疾患には特異的な症状がないため、無症状で経過している、もしくは症状があっても診断がなされない潜在的な罹患者が一定数存在するのではないかと推察される。

本疾患の診断は主に画像検査で行われる。超音波検査、造影 CT・MRI が有用とされるが、確定診断には血管造影での nidus 描出が必要となる²⁾。近年では侵襲性を考慮して 3D-CT が有用とする意見もある⁴⁾。無症状で増大傾向のないものは経過観察が可能であるが、6 カ月ごとの超音波や CT での評価が必要であるとしている²⁾。

治療について、従来は流入動脈の結紮や病巣切除などの外科的治療が行われていたが、侵襲性が高いことや再発が多いことなどから、現在では TAE が第一選択となることが多い。TAE に伴うリスクとしては周囲臓器虚血や肺塞栓が挙がる。また再開通や側副血行路が生じることによる再発が多いとされる^{5,6)}。本症例でも画像上で上直腸動脈を栄養血管とする側副血行路の発達を認めたが、幸いこれによる肉眼的血尿は未だない。

結 語

肉眼的血尿を契機に発見され、止血に TAE が有効であった骨盤内 AVM の 1 例を経験した。止血困難な膀胱出血においては本疾患を念頭に置き、早期に CT 撮影を行うことで病態把握をすることが必要であると考ええる。

文 献

- 1) Gomes MM and Ph E Bernatz : Arteriovenous fistulas : a review and ten-year experience at the Mayo Clinic. Mayo Clinic Proceedings Vol 45. No 2. 1970
- 2) Calligaro KD, Sedlacek TV, Savarese RP, et al. : Congenital pelvic arteriovenous malformations : long-term follow-up in two cases and a review of the literature. J Vasc Surg **16** : 100-108, 1992. PMID : 1619709
- 3) 鰐淵 敦, 清水 崇, 堀田 裕 : 先天性骨盤内動静脈奇形による肉眼的血尿の 1 例. 泌外 **30** : 1699-1702, 2017
- 4) 湯村 寧, 藤川 敦, 横溝由美子, ほか : 男性に発生した骨盤内 Arteriovenous malformation (AVM) の 1 例. 泌外 **23** : 745-748, 2010
- 5) Jacobowitz, Glenn R. et al. : Transcatheter embolization of complex pelvic vascular malformations : results and long-term follow-up. J vasc surg **33** : 51-55, 2001
- 6) Game, Xavier, et al. : Congenital pelvic arteriovenous malformation in male patients : a rare cause of urological symptoms and role of embolization. Eur Urol **42** : 407-412, 2002

(Received on March 18, 2024)
(Accepted on August 14, 2024)