

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

楠 裕明¹⁾, 塚本 真知¹⁾, 山下 直人¹⁾, 本多 啓介¹⁾, 井上 和彦¹⁾,
河合 良介²⁾, 今村 祐志²⁾, 眞部 紀明²⁾, 畠 二郎²⁾, 難波 祐子³⁾,
木村 佳起³⁾, 松本 啓志³⁾, 垂水 研一³⁾, 鎌田 智有³⁾, 塩谷 昭子³⁾, 春間 賢³⁾

1) 川崎医科大学総合臨床医学, 〒701-0192 倉敷市松島577.

2) 同 検査診断学 (内視鏡・超音波),

3) 同 消化管内科学

抄録 症例は10歳代女性. 数年前から食事を食べている最中や食後に上腹部の差し込むような痛みを自覚するようになったが, 自然に消失するため放置していた. しかし, 症状は度々出現し, 2~3か月前からは痛みの程度も強くなったため, X年1月川崎医科大学附属病院, 総合外来(総合診療科)を受診した. 痛みは食直後や食べている最中に出現し始め, 摂食直後が最も強く, その後30分から1時間位かけて徐々に改善した. 血液や尿検査には明らかな異常は見られず, 上部消化管内視鏡検査でも症状の原因は明らかではなかった. 腹部超音波検査(US)でルーチン検査後, 腹腔動脈の血流を測定したところ, 流速は高値でありUSでのCeliac Artery Compression Syndrome(CACS)の診断基準を満たした. 造影CT検査では腹腔動脈の明らかな狭小化は認めなかったが, 広義のCACSに相当すると考えられた. 食事に関連する上腹部痛を主訴に来院する患者の中に, CACSが含まれる可能性があり, 今後は疾患自体の啓発活動と共に診療システムの確立が必要とされる.

(平成24年6月5日受理)

キーワード: Celiac Artery Compression Syndrome (CACS), 腹部超音波検査, 腹腔動脈血流, 上腹部痛

緒言

Celiac Artery Compression Syndrome (CACS) は1960年代に Harjola¹⁾ や Dunbar²⁾ らによって初めて報告された疾患であり, 横隔膜脚を橋渡しする median arcuate ligament によって腹腔動脈の起始部が Th12~L1 のレベルで圧排され, 結果的に強い腹痛を生じる疾患である. 腹痛発現の直接原因として, 腹腔動脈の圧排による血流障害であるとする説と, 神経刺激 (neurogenic

stimulation) が生じるためとする説がある^{3, 4)} が, 食事中に発生して食後30分程度で消失する上腹部の鋭い痛みが特徴的な症状とされている. しかし, 一般的に腹痛を扱う救急科や総合診療科, 消化器内科医の間でも, この疾患は十分に認知されておらず, 腹部不定愁訴や機能的ディスペプシアとして扱われている例も多いことが予想される. 過去の報告では血管造影で診断したもの⁵⁻¹⁰⁾ が多く見られたが, 近年は腹

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

部超音波検査 (US) や CT 検査, MRI 検査を用いた報告⁸⁻¹³⁾が多い。

症例

症例 10歳代 (高校生) 女性

主訴 食事中および食後の腹痛 (差し込むような痛み)

現病歴 もともと消化器系は弱く、時々腹痛は出現していたが、いつ頃から症状が出現したのか、はっきり覚えていない。少なくとも2~3年前からは、食事中や食後に上腹部の差し込むような痛みを自覚するようになったが、自然に消失するため放置していた。しかし、2~3か月前から症状の頻度は増加し、痛みの程度も強くなってきたため、X年1月川崎医科大学附属病院、総合診療科を受診した。痛みは食事の最中に出現し、摂食直後が最も強く、その後30分から1時間位かけて徐々に改善するパターンを示した。その間嘔吐や下痢は認めていない。

既往歴 特記事項なし

家族歴 特記事項なし

習慣 アルコール・タバコ歴なし

生理 不順なし

受診時現症 身長:165 cm, 体重:55 kg, 体温35.8°C, 血圧:126/76 mmHg, 脈拍:72回/分, 整, 眼瞼結膜: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

受診時検査所見 受診時の血液検査所見を表1に示す。肝機能異常を認めたが、その他は明らかな異常は見られなかった。

上部消化管内視鏡検査 食道 S-C junction 直上に僅かなパレット上皮とグレードM (ロサンゼルス分類)の粘膜変化を認めたが、明らかなびらん性胃食道逆流症はみられなかった。胃粘膜には萎縮性変化もなく、特に異常を認めなかった (図1)。ヘリコバクターピロリ菌検査も陰性であった。

腹部超音波検査 USでは、ルーチン対象臓器

表1 血液検査所見

< CBC >		< 生化学 >			
WBC	5820/ μ l	TP	7.7 g/dl	BUN	10 mg/dl
Neut	55.2%	Glu	90 mg/dl	UA	4.5 mg/dl
Eo	1.2%	T-Bil	0.8 mg/dl	Amy	94 IU/l
Baso	0.5%	ALP	225 IU/l	CRP	0.04 mg/dl
Lym	37.1%	γ -GTP	24 IU/l		
RBC	468 \times 10 ⁴ / μ l	LDH	224 IU/l	< 赤沈 >	
Hb	14.1g/dl	Alb	4.7 g/dl	60分	8 mm
Ht	42.3 %	Glb	3.0 g/dl		
Plt	30.7 \times 10 ⁴ / μ l	ChE	484 IU/l	< 電解質 >	
		ALT	75 IU/l	Na	136mEq/l
		AST	43 IU/l	K	4.7mEq/l
		Crm	0.40 mg/dl	Cl	99mEq/l
		T.cho	172mg/dl		

と消化管のスクリーニング検査を行い、明らかな異常は見られなかった。しかし、腹腔動脈の血流を測定したところ、平均Vmax (最高流速)は200 cm/sec以上と高値であり (図2)、深吸気時の流速の低下も50 cm/sec以上と高値であった (図3)。これらの所見は、Scholbach⁹⁾の提唱した臨床症状とUS所見を用いたCACSの診断基準を満たした。

腹部造影CT検査 腹腔動脈の起始部に僅かな口径不同を認めたが、他の報告例で見られるような明らかな蛇行や狭小化は見られなかった (図4, 矢頭部)。CT angiographyの3D再構築像でも、腹腔動脈の起始部に僅かな口径不同を認めたものの、明らかな蛇行や狭小化は指摘できなかった (図5, 矢印部)。

USを用いた胃十二指腸運動機能検査では、十二指腸胃逆流が多く見られたが、近位胃拡張能が低下し、胃排出能、前庭部運動能は正常範囲内であった (表2)。消化器症状とQOLの指標となる。

Gastrointestinal Symptom Rating Scale (GSRS) 全体スコア:1.15であり、下位尺度は、酸逆流:1, 腹痛:1, 消化不良:1.75, 下痢:1, 便秘:1であった。

経過 腹部造影CT検査では腹腔動脈の起始部の狭小化は確認できなかったが、Scholbach⁹⁾の提唱した臨床症状とUS所見を用いたCACSの診断基準は満たしており、本症例は広義の

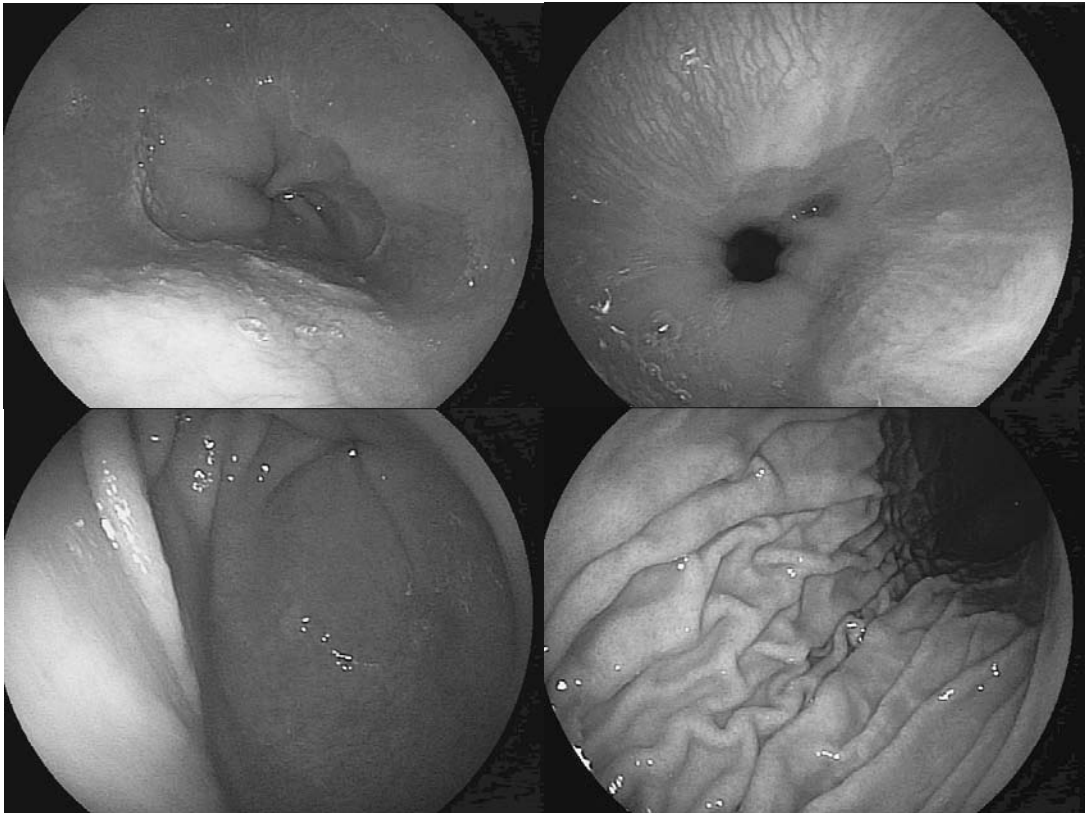


図1 上部消化管内視鏡検査所見

食道 S-C junction 直上に僅かなバレット上皮とグレード M (ロサンゼルス分類) の粘膜変化を認めたが, 明らかなびらん性胃食道逆流症はみられなかった. 胃粘膜には萎縮性変化もなく, 特に異常を認めなかった.

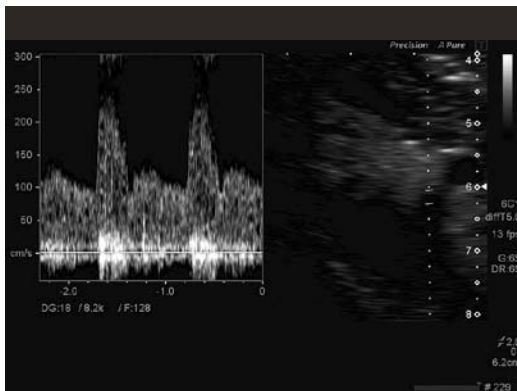


図2 腹腔動脈ドプラ超音波波形 (呼気時)
腹腔動脈血流を測定したところ, 流速は250 cm/sec 以上と高値であった.

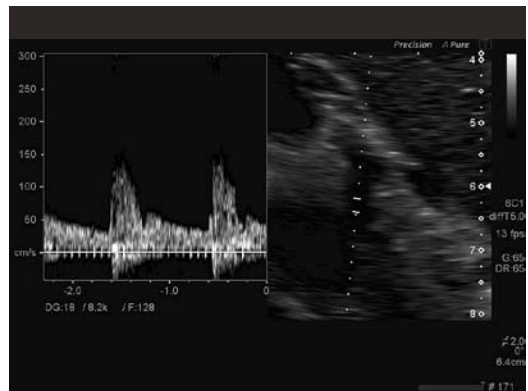


図3 腹腔動脈ドプラ超音波波形 (吸気時)
深吸気時の血流は150 cm/sec であり, 呼気時と比較して 50 cm/sec 以上の低下がみられた.

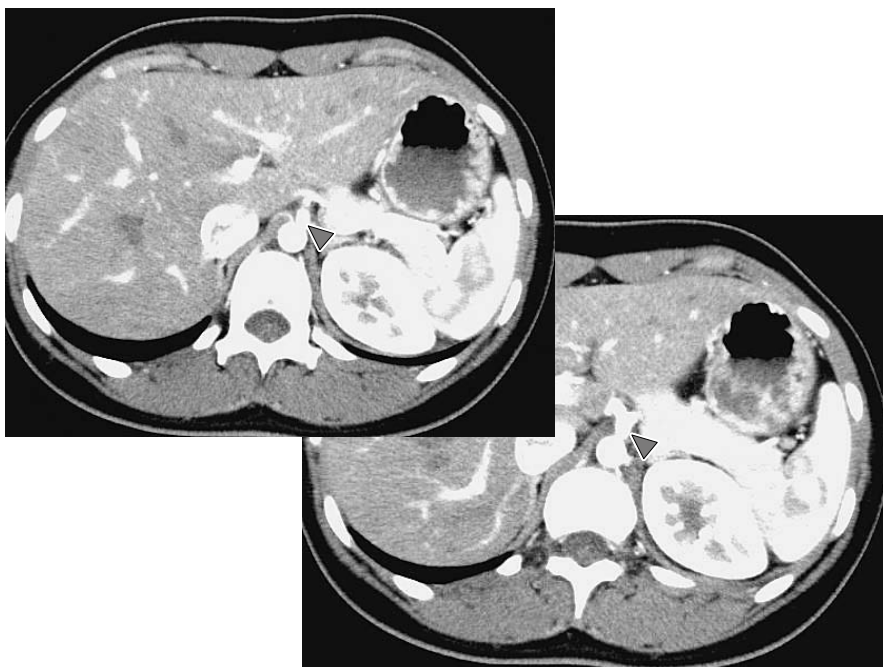


図4 腹部造影CT検査所見（腹腔動脈起始部レベル）
 腹腔動脈の起始部にわずかな口径不同を認めたが、明らかな蛇行や狭小化は見られなかった。

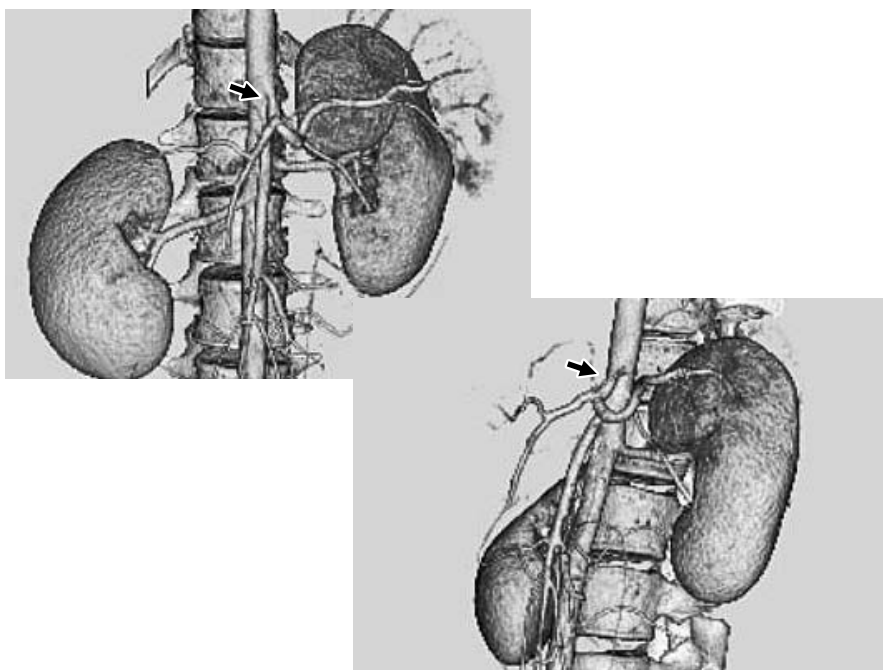


図5 CT angiographyの3D再構築像
 3D再構築像でも、腹腔動脈の起始部に僅かな口径不同を認めたものの、明らかな蛇行や狭小化は指摘できなかった。

表2 胃十二指腸運動機能検査

近位胃拡張能 = 拡張不良あり
胃排出率 = 57.3% (正常範囲内)
前庭部運動能 (Frequency) = 9.47回 / 3分 (Amplitude) = 95.8%
Motility index = 9.07 (正常範囲内)
十二指腸胃逆流
1cm × 7, 2cm × 5, 3cm × 10 / 5分
Reflux index = 47 (著明に増加)

CACSであると判断した。本人と家族に「広義のCACSである可能性が高い」と告げ、病態の説明を行った。その後、治療および確定診断のために、手術による median arcuate ligament の切除が必要であることを説明したが、痛みの原因が判明して安心したこと、症状が自制内であり大きくQOLを大きく障害していないこと、などの理由で希望されず、消化管運動改善薬と酸分泌抑制薬の内服で経過観察中である。

考 察

CACSの腹痛発現の原因には、腹腔動脈の血流障害とする説と、神経刺激 (neurogenic stimulation) のためとする説がある^{3, 4)}が、食事中に発生して食後30分程度で消失するなどの特徴的な症状から、血流障害による説の方が有力である。疫学的には1対4で女性に多く30歳から50歳で診断される場合が多い¹⁴⁾と報告されているが、性差の生じる原因や、先天性の器質的疾患であるにもかかわらず、すぐに大きな症状とならず、成人で診断される例が多い理由などは判っていない。また、他疾患の治療中に偶然発見される例も多く、必ずしも腹腔動脈の圧迫が症状の原因となっていない症例も散見される。一方、欧米からの報告と比較して、本邦からの報告例は少なく^{15, 16)}、その理由として、この疾患の認知度が本邦の臨床医の間で十分でないことが考えられる。現在、他疾患として診断・加療されている中にも、CACSが含まれている可能性があり、今後本邦でも疾患自体の啓発活動や実態調査などが必要であると思われる。

Scholbach¹⁷⁾は3,449例(0-18歳)の腹痛患者に7,639回のドブラ超音波を施行し、腹腔動

脈血流を測定しており、そのうちの59例(1.7%)が①食後の症状がある(食後すぐに出現し30分かけて徐々に軽快する腹痛; 71%, 嘔気; 29%, 胸痛; 25%, 胸やけ; 17%, 体重減少; 15%, 嘔吐; 15%, 収縮期雑音; 15%)②血管雑音がある③腹腔動脈基礎血流が200 cm/sec以上である④吸気時の腹腔動脈血流が基礎血流から50 cm/sec以上低下、という4つの条件を満たしており、CACSの可能性が高いことを指摘した。そのため、この条件は超音波を用いたCACSの診断基準として提唱されている。本症例はCTで腹腔動脈の起始部に僅かな口径不同を認めたが、他の報告例でみられるような明らかな蛇行や狭小化は見られなかった。しかし、Scholbachの診断基準を総て満たしていたため、われわれはこの症例をCACSの可能性がきわめて高いと判断した。CTで腹腔動脈の起始部の狭小化が見られなかった原因として、撮影時が深吸気であったため、かえって圧排が解除された可能性があること、血管内腔側にのみ狭小化があったことなどが考えられた。CTの再検査や血管造影検査は施行出来ていないが、現時点では少なくとも広義のCACSであろうと判断している。一方、腹腔動脈の起始部が狭小化した場合、上腸間膜動脈から膵十二指腸動脈、更に胃十二指腸動脈を経由して逆行性の血流増加がみられるが、この血流経路が十分に発達している場合は、腹腔動脈の狭小化による胃への血流障害は出現しない可能性がある。腹腔動脈の狭小化と症状発現が、必ずしも一致しない例が存在する理由は、それらの血流経路と関連が深いと考えられるが、その証明は困難が予想される。今後の更なる研究によってこれらの疑問が解明されることを期待したい。

また、今回われわれは、超音波法を用いた胃十二指腸運動機能検査を施行したが、コンソメスープ400 ml 飲用後の胃排出能、前庭部運動能は正常範囲内であり、近位胃拡張能の低下と十二指腸胃逆流の増加を認めた。そのデータがCACSの病態である腹腔動脈の血流障害と関連を有するかは不明であるが、本症例は消化管運

動機能異常が指摘され、一時機能性ディスペプシアと診断された。また、僅かであるが内視鏡的にバレット上皮の像も見られたことから、軽度の胃食道逆流症も症状に関与していると考えられていた。過去の報告に、CACS 症例の胃運動を評価し、胃排出の遅延を指摘したものがあるが⁷⁾、症状発現の病態としては考えにくいと思われる。

治療に関しては、本症例では消化管運動改善薬や酸分泌抑制薬を投与するのみであり、直接病態に対する対策は行えていない。二次的に生じた可能性が高い消化管運動異常と、全体の症状との関与性も解明されておらず、これまでの報告でも消化管運動改善薬や酸分泌抑制薬は、多少症状を改善することはあっても、症状を完全に解決するには至っていない。従って、最終的に median arcuate ligament の一部を外科的切除した報告が多く^{6-8, 14, 18, 19)}、腹腔鏡を用いて日帰り手術で加療された報告も散見される¹⁹⁾。患者が手術を受け入れず経過観察となっている例も報告されている⁹⁾が、総じて術後の症状消失率は良好であることから、治療法として最も有用なのは手術であることは間違いない。しかし、十分に病態を説明した上で、食事中に小さく呼吸するなどの生活指導を薬剤治療と平行して行うことは有用と考えられ、内科的にどのように経過をみるかが今後の大きな課題である。また、すべての施設には必要ないが、本邦でも適切な診断と外科的治療が可能な、核（センター）となる施設がいくつか必要であると思われる。

結 語

食事中や食後の腹痛を訴え、US による診断基準を満たしたことから、広義の CACS であると思われる症例を経験した。食事に関連する上腹部痛を訴え、機能性胃腸症や逆流性食道炎と診断された患者の中に CACS が含まれる可能性があり、難治性の腹部不定愁訴を経験した場合は CACS を鑑別するため、超音波での血流評価や 3D-CT の実施を検討すべきである。

引用文献

- 1) Harjola PT. A rare obstruction of the celiac artery. Report of a case. *Ann Chir Gynaecol Fenn* 52: 547-550, 1963
- 2) Dunbar JD, Molnar W, Beman FF, Marable SA. Compression of the celiac trunk and abdominal angina. *AJR Am J Roentgenol* 95: 731-744, 1965
- 3) Bech FR. Celiac artery compression syndromes. *Surg Clin North Am* 77: 409-424, 1997
- 4) Karahan ÖI, Kahriman G, Yikilmaz A, Ok E. Celiac artery compression syndrome: diagnosis with multislice CT. *Diagn Interv Radiol* 13: 90-93, 2007
- 5) Holland AJ, Ibach EG. Long-term review of celiac axis compression syndrome. *Ann R Coll Surg Engl* 78: 471-472, 1996
- 6) Kernohan RM, Barros D'Sa AAB, Cranley B, Johnston HML. Further evidence supporting the existence of the celiac artery compression syndrome. *Arch Surg* 120: 1072-1076, 1985
- 7) 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, 1993
- 8) Loffeld RJLF, Overtoom HAJM, Rauwerda JA. The celiac axis compression syndrome Report of 5 cases. *Digestion* 56: 534-537, 1995
- 9) Tseng YC, Tseng CK, Chou JW, Lai HC, Hsu CH, Cheng KS, Peng CY, Chen YF. A rare cause of mesenteric ischemia: Celiac axis compression syndrome. *Inter Med* 46: 1187-1190, 2007
- 10) Gander S, Mulder DJ, Jones S, Ricketts JD, Soboleski DA, Justinich CJ. Recurrent abdominal pain and weight loss in an adolescent: Celiac artery compression syndrome. *Can J Gastroenterol* 24: 91-93, 2010
- 11) Özbülbul NI. CT angiography of the celiac trunk: anatomy, variants and pathologic findings. *Diagn Interv Radiol* 17: 150-157, 2011
- 12) Karahan ÖI, Kahriman G, Yikilmaz A, Ok E. Celiac artery compression syndrome: diagnosis with multislice CT. *Diagn Interv Radiol* 13: 90-93, 2007
- 13) Manghat NE, Mitchell G, Hay CS, Wells IP. The median arcuate ligament syndrome revisited by CT angiography and the use of ECG gating—a single centre case series and literature review. *Br J Radiol* 81: 735-742, 2008
- 14) Trinidad-Hernandez M, Keith P, Habib I, White JV. Reversible gastroparesis: functional documentation o

- celiac axis compression syndrome and postoperative improvement. *Am Surg* 72: 339-344, 2006
- 15) Ogino H, Sato Y, Banno T, Arakawa T, Hara M. Embolization in a patient with ruptured anterior inferior pancreaticoduodenal arterial aneurysm with median arcuate ligament syndrome. *Cardiovasc Intervent Radiol* 25: 318-319, 2002
- 16) Fujisawa Y, Morishita K, Fukada J, Hachiro Y, Kawaharada N, Abe T. Celiac artery compression syndrome due to acute type B aortic dissection. *Ann Vasc Surg* 19: 553-556, 2005
- 17) Scholbach T. Celiac artery compression syndrome in children, adolescents, and young adults; clinical abdominal duplex sonographic features in a series of 59 cases. *J Ultrasound Med* 25: 299-305, 2006
- Berard X, Cau J, Déglise S, Trombert D, Saint-Lebes B, Midy D, Corpataux JM, Ricco
- 18) JB. Laparoscopic surgery for coeliac artery compression syndrome: Current management and technical aspects. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 43: 38-42, 2012
- 19) 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

Possible diagnosis of celiac artery compression syndrome in a patient who had abdominal pain during and after eating

Hiroaki KUSUNOKI¹⁾, Machi TSUKAMOTO¹⁾, Naohito YAMASHITA¹⁾

Keisuke HONDA¹⁾, Kazuhiko INOUE¹⁾, Ryosuke KAWAI²⁾

Hiroshi IMAMURA²⁾, Noriaki MANABE²⁾, Jiro HATA²⁾, Yuko NANBA³⁾

Yoshiki KIMURA³⁾, Hiroshi MATSUMOTO³⁾, Ken-ichi TARUMI³⁾, Tomoari KAMADA³⁾

Akiko SHIOTANI³⁾, Ken HARUMA³⁾

1) Department of General Medicine, 2) Department of Endoscopy and Ultrasound, 3) Division of Gastroenterology, Kawasaki Medical School, 577 Matsushima, Kurashiki, 701-0192, Japan

ABSTRACT We report the case of a girl in her teens, who, some years ago, had pain due to cramps in the upper part of her abdomen during and after eating. She was not treated, but the pain spontaneously disappeared. However, later, she started having frequent bouts of pain, and its severity began to increase about 2 to 3 months ago, and thus, she visited the division of outpatients clinic of Kawasaki Medical School Hospital. We noted that the pain occurred during and after eating, and it was the most severe immediately after eating; after about 30 to 60 min, the pain gradually subsided. Blood and urine examinations revealed no obvious abnormalities, and upper gastrointestinal endoscopy indicated no obvious causes of 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 celiac artery compression syndrome (CACS). Although contrast-enhanced computed tomography showed no obvious narrowing of the celiac artery, a possible diagnosis of CACS was made. Some patients who had abdominal pain associated with eating and were treated as functional dyspepsia might have CACS. Therefore, awareness of the disease itself and establishment of a medical care

system are required in the future.

(Accepted on June 5, 2012)

**Key words : Celiac Artery Compression Syndrome(CACS), Ultrasound,
Abdominal pain during and after eating, CT angiography**

Corresponding author

Hiroaki Kusunoki

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

Phone : 81 86 462 1111

Fax : 81 86 464 1047

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