

一 症 例 一

高度の便秘症を伴った結腸囊腫様気腫の1例

帝京大学外科 (主任: 四方淳一教授)

大 内 博 小 林 国 男

(受付 昭和 年 月 日)

A CASE OF PNEUMATOSIS CYSTOIDES INTESTINALIS INVOLVING THE LEFT SIDE OF THE COLON WITH MARKED CONSTIPATION

Hiroshi OHUCHI, Kunio KOBAYASHI,

Department of Surgery, Teikyo University School of Medicine, Tokyo

緒 言

腸管囊腫様気腫は消化管壁にガスで充満した無数の囊腫が存在する疾患で Pneumatosis intestinalis, Intestinal emphysema, Gas cyst of the intestine, Bullous emphysema of the intestine などともよばれているまれな疾患である。われわれは肺結核治療中に高度の便秘が出現して某医でS状結腸癌と診断され当科に入院したが、その後の検査でS状結腸癌よりむしろ非特異性腸炎、結腸囊腫様気腫などが疑われ手術の結果、粘膜下の結腸囊腫様気腫と判明した39才の女性に、結腸左半切除術を施行して全治せしめたので、文献的考察を加えて報告する。

症例

患者: 39才, 女性

主訴: 高度の便秘, 下腹部膨満感

既往歴: 昭和45年4月から肺結核

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 昭和46年12月頃から便秘がちとなつたが自分では当時服用していた抗結核剤(PAS, INH)のためと思ひ放置していた。しだいに便秘が増悪してきたために47年5月頃から緩下剤を服用し、一時症状は軽減したが同年夏頃から再び便秘が増悪し、緩下剤の服用にもかかわらず便通は週に1度位となつた。さらに下腹部膨満感も伴ってきたため、47年11月某医で注腸透視をうけS状結腸癌と診断され当科に入院した。入院後たびたび浣腸を行なつたが効果は少なく少量の排便を見るのみであつた。一方排ガスは良好であつた。

入院時現症: 体格は中等大, 栄養ほぼ正常, 血圧正常, 眼結膜に貧血や黄疸なし。胸部は理学的に正常, 右肺肝境界は打診上, 右中鎖骨線上第6肋間。上腹部は平

坦で軟いが左下腹部に軽度膨隆を認め、その部に縦に細長い約15×4cm大の弾性硬を有する腫瘤様抵抗を触れる。左右に移動性がわずかにみられ皮膚との癒着はない。圧痛、筋性防禦もない。腸雑音は亢進していない。

検査成績: 別表の如く異常はない(表1)。

表1 入院時一般検査成績

血 液		血液化学	
RBC	388×10 ⁴	総ビリルビン	0.74mg/dl
Hct	44%	GOT	29K.U.
Hb	12.5g/dl	GPT	27K.U.
WBC	6600	Al-ph	13K.A.
出血・凝固	正常	LDH	430
尿		T T T	1.8Kunkel
pH	6	Z T T	6.1Kunkel
比重	1,027	総コレステロール	236mg/dl
蛋白	(-)	総蛋白	6.3g/dl
糖	(-)	A/G	1.42
ウロビリノーゲン	(±)	尿素窒素	16.0mg/dl
沈 渣		Na	140 mEq/l
赤血球	(-)	K	4.6 "
白血球	1~2	Cl	106 "
上皮細胞	2~3	血沈 1 hr	4
円 柱	(-)	2 hr	7
細 菌	(+)	心電図	正常
ワッセルマン	陰性		

X線所見: 胸部単純X線写真で左上右肺野に結核と思われる陰影が存在していた。他医で行なわれた注腸造影でS状結腸から直腸上部にかけて腫瘤による陰影欠損像が見られた(図1)。当科入院時の腹部単純X線写真では10日目のバリウムがなお多量に残っていた。

図1 注腸レ線像



大腸ファイバー所見：肛門から20cmの部分まで挿入したが、その先は腫瘤による狭窄が高度のため挿入不能であった。粘膜には表面が比較的平滑な半球状隆起が全周性に見られたが、潰瘍、癒痕形成、苔の付着などはなかった。肛門から14cmのところ有病変の最下端と思われる、そこには後壁に発赤を伴う隆起が見られた。病変部から計5コの生検を行なったがそれによる隆起の消失はなく、またとくに出血しやすいこともなかった。病理組織学的に悪性所見は認められなかった。

胃ファイバー所見：とくに異常はなかった。

以上のデータをもとにわれわれは

- 1) 経過が長い(1年余)にもかかわらず全身状態がよい。
- 2) 悪性腫瘍、炎症性疾患にみられる血沈亢進がない。
- 3) X線的に陰影欠損の範囲が広すぎる。
- 4) 生検で粘膜に悪性像が全くない。
- 5) 既往に下血、粘液便などが無い。

などの諸点からS状結腸癌よりもむしろ非特異性腸炎、腸管囊腫様気腫などを考えて昭和47年12月7日手術を行なった。

手術所見：G.O.F. 気管内挿管麻酔のもとに下腹部正中切開で腹腔に達した。腹水はなく胃、十二指腸、肝、脾、空回腸、子宮、付属器、膀胱などに異常はみとめられなかった。結腸には硬い腫瘤は触れず腸管囊腫様気腫の所見であった。すなわちS状結腸から直腸腹膜翻転部

におよぶ長さ約35cmの範囲、さらに21cmの健常と思われる部分をはさんで、脾曲部に近い下行結腸の長さ約20cmの範囲に触診上軟かい独特の抵抗があり、ちょうど空気の充満したスポンジ、あるいはクッションを握っている感じであった。腸壁はやや浮腫状であったが炎症あるいは癌の浸潤を思わせる所見はなく、周囲臓器との癒着もなかった。周辺の腸間膜リンパ節にも異常は認められなかった。脾曲部に近い下行結腸の一部に米粒大から大豆大の多数の気泡が漿膜下、腸間膜ならびに腹膜垂にも見られた。以上の所見から主として粘膜下、一部漿膜下におよぶ結腸囊腫様気腫と診断し、便秘症状が長期にわたり高度でかつ進行性であるため結腸左半切除術を施行した。

切除標本肉眼所見：粘膜面には潰瘍や炎症の所見はな

図2 切除標本

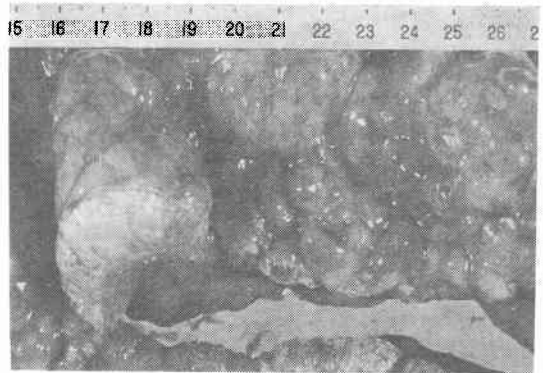
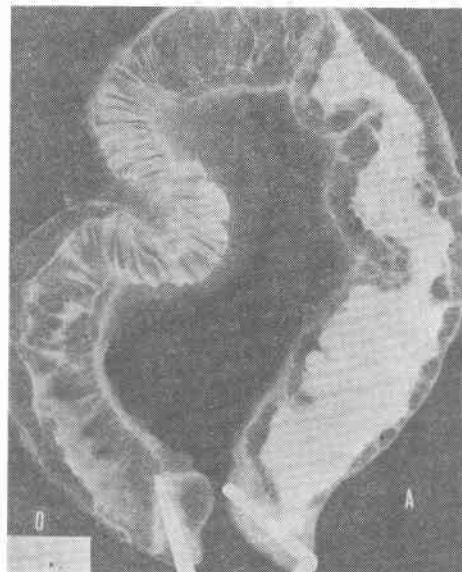


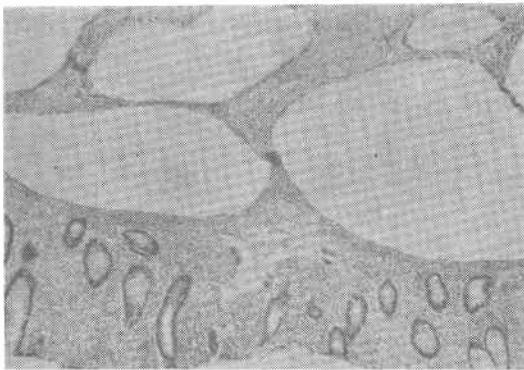
図3 切除標本バリウム造影



く、粘膜下の気胞による突出が全周性に見られちようどすず子様であり、その大きさは米粒大から示指頭大であった(図2)。剖面では薄い膜で蜂窩状に隔てられた大小不同の多数の気胞が、大部分は粘膜下に一部漿膜下にも認められた。筋層には気腫は認められなかつた。切除標本のバリウム造影で粘膜下気胞の突出と、それによる腸内腔の狭窄が認められた(図3)。

病理組織学的所見：気胞は1～2層の立方状上皮で囲まれた cyst 様構造で、粘膜下あるいは漿膜下に見られた。間質にはリンパ球、組織球が多数出現し Xanthoma cell, Giant cell も認められた。一部の気胞内には粘液が存在しそこには赤血球も少数見られた。しかし細胞異形性、核濃染性などの悪性所見は全くなかつた(図4)。

図4 組織所見(H-E染色)



術後経過：良好に経過し3日目に排ガスがあり、以後排便もきわめて順調であつた。術後の注腸透視および大腸内視鏡検査でも異常所見はなく、全治退院した。

考 察

腸管囊腫様気腫は Duverney (1648—1730) John Hunter (1728—1793) らが剖検例で報告したのが最初である。その後は1825年に Mayer が豚の小腸に発見し報告している。1876年 Bang が腸軸捻転症で死亡した婦人の剖検例で報告し、手術時に発見した第1例は1899年 Hahn である、それ以後欧米では300例以上の報告があり、本邦では1901年三輪が剖検例の報告をして以来、1971年3月までに167例が報告されている¹⁰⁾。

性別発生頻度は男に多いとされており、Koss は3.5 : 1の割合でとくに30～50才では6 : 1で男に多いと報告している⁹⁾。本邦でも1.8 : 1(小田ら)¹⁰⁾ 3 : 1(米川)¹²⁾ 2.3 : 1(和崎)¹³⁾といずれも男に多い。年令的には20～50才に多く高令者または幼小児には少ない⁹⁾。しかし81才あるいは生後数日の新生児の報告例も見られる¹⁴⁾。成人では漿膜下に多く小児は粘膜下囊腫が多い

という⁹⁾¹⁴⁾。われわれの症例は成人であるが殆んどが粘膜下にあり一部漿膜下にも見られた。囊腫様気腫は腸管のみならず胃大弯側、腹膜、大網、腸間膜、横隔膜、膈などに発生した報告もあり²⁴⁾、漿膜の存在するところにはすべて発生しうるといふ人もいる。筋層内の発生は非常に少ない。

囊腫様気腫の大きさは多くは粟粒大から小鶏卵大までであるが、小児頭大に達することもある。粘膜下囊腫様気腫では、粘膜表面は灰白色、淡黄色、暗赤色などを呈しちようどすず子様に見える。剖面では薄い膜で区切られた囊腫が蜂窩状に多数存在し、たがいに隔絶されている。囊腫様気腫の部分を押ると握雪感があり、また薄い隔膜は容易に破ることができる。

内容は気体が大部分であり時に漿液、粘液、血液などをいれている場合もある。気体成分の組成は腸内ガスよりもむしろ大気ガスに近いとされている⁹⁾¹³⁾。

Koss⁹⁾ は腸管囊腫様気腫の42%が primary で残り58%は、他の消化器疾患などを伴う secondary のものであるとしている。諸家の報告によれば胃十二指腸潰瘍の穿孔あるいは幽門狭窄に併存する場合が多く、その他胃癌、虫垂炎、腸閉塞症などに併存した例が報告されている。また肺結核、喘息などの呼吸器疾患に続発したり²⁾ さらに大腸内視鏡、直腸鏡、生検などの検査後に発生した例も報告されている⁵⁾。

臨床症状は特異なものではなく、囊腫様気腫の発生部位ならびに併存する疾患によつて種々様々である。

本症の診断上X線写真ならびに内視鏡検査が大きききめてとなることがある。本症例のごとく結腸に発生した腸管囊腫様気腫の診断には、注腸透視が有効でありその特徴的所見として、充満したバリウムのヒラギ葉様陰影あるいはその外側の異常な透明区域像があげられる。その境界は平滑なこともあるし、不規則な thumb printing 様の陰影欠損として見られることもある。粘膜下囊腫様気腫の内視鏡的特徴としては、表面平滑な連続する半球状隆起像があげられる。粘膜は淡黄色の色調が強くなり、出血、苔附着、潰瘍形成などは少ない。生検によつてその隆起が消失すれば診断は一層確実となる。

病理組織学的には特徴的所見はなく、囊腫は1～3層の扁平あるいは立方状上皮で被われ、その周囲に好酸性リンパ球、組織球あるいは異物反応と考えられる多核巨細胞が出現することがある。囊腫は拡張したリンパ管を思わせるという報告もある²⁾。

腸管囊腫様気腫の原因には従来、新生物説、細菌説、栄養および化学説、機械的発生説などが述べられている。Bang の唱える新生物説は現在支持されていない。

また細菌説ではある種の桿菌を認めている報告もあり、病理組織学的に急性リンパ管炎を伴うとも言うが、他のリンパ管炎に本症が起らないこと、さらに囊腫が破れても腹膜炎が発生しない、組織学的に炎症性変化に乏しいなどからこの説は否定的であろうと思われる。脂肪新陳代謝障害によるという化学説、あるいは各種栄養障害が原因とする説もある。Masson は局所の酸塩基平衡が崩れ、そこにリンパ管閉塞機転が生じガスがリンパ管内に貯るのであるとしている。機械的発生説について Shapiro¹¹⁾は

1) 十二指腸潰瘍穿孔、幽門狭窄による胃内圧亢進などに起因する粘膜の小さい裂隙などから、消化管内ガスが粘膜下に侵入する。

2) 大腸内視鏡、生検などの際の粘膜損傷部から空気が侵入する。

3) 激しい咳嗽を伴う呼吸器疾患において縦隔洞にでた空気が、後腹膜から腸壁に達し、そこに囊腫様気腫を形成する。

の3経路にまとめている。Marshak⁹⁾は幽門狭窄に合併する場合は小腸から右結腸に多く、大腸内視鏡検査後は左結腸に発生しやすいと言及している。

以上述べた種々の仮説のうち、本症にしばしば併存する消化器疾患、呼吸器疾患に因果関係を求めた機械的発生説を支持する論文が比較的多くみられ、また実験的に腸管囊腫様気腫を作製しえたとの報告もみられる¹⁾。しかしながらいずれも本症の発生機序を十分に説明するものとはいいがたく、全く原因不明の例も多いと思われる。またたとえ何らかの因果関係を示唆する併存症がある場合にも、原因を一元的に説明することは困難で多くの因子がからみ合っていると考えねばならないだろう。われわれの症例は肺結核が併存していたが咳嗽はなく、また他の消化器疾患や粘膜損傷機転もみとめられず、いわゆる原因不明の部類に属するものと考えている。

腸管囊腫様気腫は本来良性疾患であり剖検時あるいは開腹時にたまたま発見される例も多い。したがってその治療は対症的に行なわれ自然に消失する例もある。しかしわれわれの症例の如く囊腫様気腫のために便秘が著明な場合、あるいは腸軸捻転症を起した場合には腸切除が必要となることがある。

予後は一般に良いとされている。

結 語

われわれは39才の女性にみられた高度の便秘症を伴った結腸囊腫様気腫に対し、結腸左半切除術を施行し全治せしめた1例を経験したので文献的考察を加えて報告した。

稿を終えるにあたりご指導、ご校閲頂いた四方淳一教授に深謝する。

(本論文の要旨は第677回外科集談会において発表された。)

文 献

- 1) Keyting, W.S., et al.: Pneumatosis intestinalis: A new concept. *Radiology* **76**: 733, 1961.
- 2) Koch, G., et al.: Pneumatosis cystoides intestinalis. *Bruns. Beitr. Klin. Chir.* **216**: 665, 1968.
- 3) Koss, L.G.: Abdominal gas cysts. *Arch. Path.* **53**: 523, 1952.
- 4) Mackenzie, E.P.: Pneumatosis intestinalis. *Pediatrics* **7**: 537, 1951.
- 5) Marshak, R.H., et al.: Pneumatosis of the colon. *J.A.M.A.* **148**: 1416, 1952.
- 6) Marshak, R.H., et al.: Pneumatosis involving the left side of the colon. *J.A.M.A.* **161**: 1626, 1952.
- 7) 松永藤雄他: 内視鏡検査(大腸). *内科* **28**: 1029, 1971.
- 8) McGregor, J.K., et al.: Intestinal interstitial emphysema. *Gastroenterology* **35**: 206, 1958.
- 9) Mujahed, Z., et al.: Gas cysts of the intestine. *Surg. Gynec. Obst.* **107**: 151, 1958.
- 10) 小田正幸他: 内視鏡的に観察した腸管囊腫様気腫の1例. *Gastroent. Endosc.* **15**: 69, 1973.
- 11) Shapiro, B.J., et al.: Pneumatosis cystoides intestinalis involving the left side of the colon. *Canad. Med. Ass. J.* **91**: 219, 1964.
- 12) 米川 温: 腸管囊腫様気腫の1例: 臨床外科 **20**: 1289, 1965.
- 13) 和崎昭雄他: 腸管囊腫様気腫の1例. *長崎医誌* **38**: 551, 1963.
- 14) Wolloch, Y., et al.: Pneumatosis cystoides intestinalis of adulthood. *Arch. Surg.* **105**: 723, 1972.