

## 成人にみられた S 状結腸重複症の 1 例

国立嬉野病院外科

下山 孝俊 西川 清臣 吾妻 康次 久野 博  
本庄 誠司 松尾 誠司 木田 晴海

成人の大腸重複症は極めてまれである。気尿を契機に発見された26歳の男性の S 状結腸重複症の 1 例を報告する。本症例は既往歴、家族歴に特記事項なく、約 2 年前に野球で走塁中に突然の腹痛と同時に気尿を認めるようになった。近医で保存的治療を受けたが、症状の緩解増悪を繰り返した。身体所見で特に変化はなく、注腸造影にて S 状結腸から分岐した重複結腸がみられ、その末梢は盲端となっていた。膀胱造影で瘻孔は造影されなかったが、膀胱鏡で不完全重複膀胱が示唆され、腰椎の X 線写真で仙骨の 2 分脊椎がみられた。膀胱瘻を合併した管状の S 状結腸重複症と診断し、重複腸管切除術を施行した。S 状結腸の腸間膜側から分岐した 30cm の重複腸管で、病理組織学的には正常大腸壁と同じ構造であった。なお異所性粘膜は認められなかった。

**Key words:** tubular duplication of sigmoid colon, pneumatouria, enterovesical fistula

### はじめに

消化管重複症 (duplication of the alimentary tract) は舌根より肛門にいたる全消化管にみられる比較的可成りまれな先天性奇形である<sup>1)</sup>。従来よりの名称としては、enteric cyst, giant diverticula, unusual Meckel's diverticula, ileum duplex, jejunum duplex などがあり、主に幼児に多く、成人には極めてまれである<sup>2)</sup>。消化管重複症はその形態から球状 (嚢状) と管状に分類される<sup>3)</sup>。今回我々は結腸・膀胱瘻による気尿にて発症した管状の S 状結腸重複症 (tubular duplication) の 1 例を経験したので、大腸重複症に関する文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：26歳、男性

主訴：下腹部痛、気尿

既往歴、家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成 3 年 4 月、野球で走塁中に急に下腹部痛があり、腹部膨満感とともに尿混濁、気尿を認めて近くの病院に緊急入院した。保存的治療にて約 1 週間で軽快退院したが、退院後も同じような症状がしばしばみられ、近医で入退院をくりかえしていた。平成 5 年 6 月初旬頃より再び尿混濁、腹痛、発熱があり、同年 6 月 15 日当院外科に入院となった。

入院時現症：身長 175cm、体重 62kg、体格、栄養中等度、貧血、黄疸を認めず。腹部は平坦軟であったが、下腹部に軽い圧痛がみられた。直腸指診では異常はみられなかった。

血液生化学的検査所見：CRP の軽度上昇のほかはとくに異常は認められなかった。

膀胱鏡検査：左右の尿管の開口部には異常はみられなかったが、両尿管の間に粘膜ひだの欠損と膀胱の後壁に矢状方向に走行する隆起がみられた。これは膀胱の左右両室が不完全に分離するいわゆる不完全重複膀胱が示唆された。膀胱内には多量の気泡を認めるも瘻孔部は明視できなかった。膀胱造影でも瘻孔は造影されなかった。

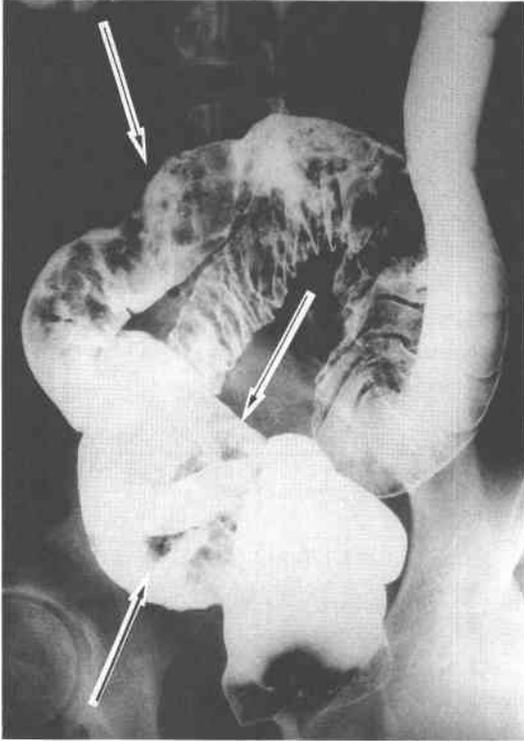
注腸造影所見：下行結腸と S 状結腸との移行部から分岐した重複結腸が造影され、その先端は膀胱付近で盲端となっていた (Fig. 1)。その他の大腸に異常を示す所見は認められなかった。

大腸内視鏡所見：重複結腸の分岐部を確認するのは困難であった。膀胱鏡と同時に併用して検索したが、大腸内に送気した空気は膀胱内に流出しなかった。

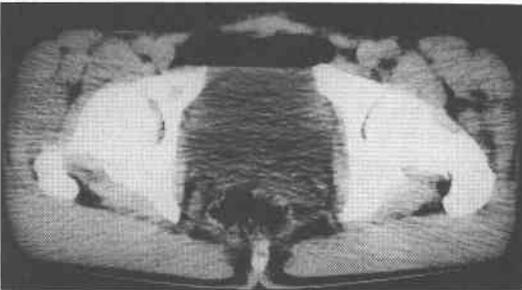
下腸間膜血管造影所見：動脈相ともに基本的血管走行に変化はなく、また異常陰影もみられなかった。

腹部 computed tomography (CT) および超音波検査所見：膀胱内に多量のガス像がみられた (Fig. 2)。超音波検査では膀胱底部の左側壁の肥厚と拡張不良がみられたが、膀胱瘻は指摘できなかった。

**Fig. 1** Barium enema showing a duplication of the sigmoid colon which was blind end distally (arrow : duplicated colon).



**Fig. 2** Computed tomographic scan of the lower abdomen showing a massive gas in the urinary bladder.



消化管シンチグラフィ ( $^{99m}\text{Tc}$ ): とくに異常集積像はみられなかった。

胸・腰椎 X 線所見: 仙骨に 2 分脊椎がみられた。

以上の所見より S 状結腸重複症の診断で平成 5 年 7 月 15 日に手術を施行した。

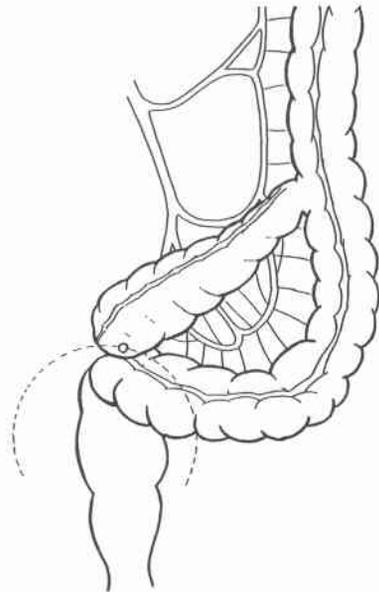
手術所見: 下腹部正中切開にて開腹, 重複腸管は下

行結腸と S 状結腸移行部より肛門側約 20cm の S 状結腸から分岐していた。重複腸管の長さは約 30cm で多量の糞塊が充満していた。その遠位端は盲端で膀胱の右側頂部に癒着し、瘻孔を形成していた。血管支配は S 状結腸と重複腸管の基本血管構築は共有しており、辺縁動脈からの vasa recta がおのおの腸管に分布していた。また膀胱の頂部の中心部は軽度の陥凹がみられたが、術中所見から不完全重複膀胱の診断は困難

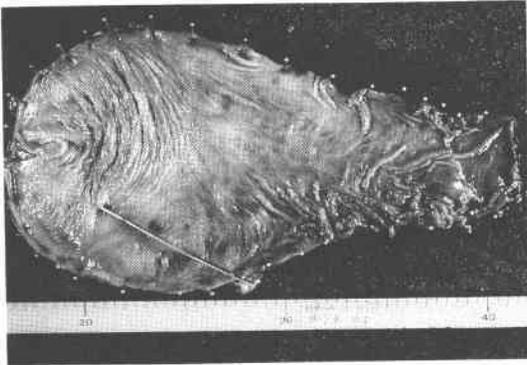
**Fig. 3** Operative findings after resection of the mesentery showing the duplicated colon on the mesenteric side of the sigmoid colon, which ended blindly at 30cm distally and was distended with feces.



**Fig. 4** Schematic illustration of the duplicated sigmoid colon found in the patient.



**Fig. 5** Macroscopic findings of resected specimen showing the mucosa same as sigmoid colon and the fistula formation which communicated with urinary bladder.



であった。膀胱頂部の周囲との癒着を剝離したのち、瘻孔を含めて膀胱を部分切除して縫合閉鎖するとともに、重複腸管は vasa recta を結紮切離して遊離し、S 状結腸の分岐部で切除した (Fig. 3, 4)。

切除標本肉眼的所見：腸管の長さ約30cm、粘膜・筋層・漿膜がみられ、本来の S 状結腸と同一の形態であった。遠位端の盲端部には瘻孔がみられた (Fig. 5)。

病理組織検査所見：腸管壁は粘膜から漿膜側まで正常結腸と全く同一で、管状 S 状結腸重複症と診断された。なお、瘻孔の部位の筋層部には小膿瘍と巨細胞を伴う肉芽の形成がみられた。

術後経過：経過は順調で、1年6か月経過した現在、症状なく、健康に就労している。

### 考 察

消化管重複症の定義は Ladd ら<sup>1)</sup>によれば、1) 平滑筋によって覆われている、2) 内面に消化管粘膜を有する、3) 消化管のある部分に密着して存在するの3つの点を満たす疾患とされ、現在これが広く受け入れられている。本症の発生機序としては Lewis ら<sup>4)</sup>の胎生期腸管憩室説 (1907)、Bremer<sup>5)</sup>の胎生6~7週の solid stage からの再疎通障害説 (1944)、Veeneklass<sup>6)</sup>の胎生期初期の脊索と腸管の発育分離に際しての障害説 (1952) および Bentley ら<sup>7)</sup>の脊索分離症候群 (1960) など多くの説があるが、現在では後者の3つの説が有力視されている。発生部位は、舌根から肛門に至るすべての消化管に発生するが、空・回腸で53.3%と過半数を占め、回盲部を含めた回腸に頻度が高い<sup>8)</sup>。本邦では田村<sup>9)</sup>の報告 (1923) 以来、消化管重複症は約200例以上が報告され、そのうち大腸重複症は89例の集計が

あり、15歳以上は39例にみられている<sup>10)</sup>。

消化管重複症の形態は球状 (嚢状) と管状に大別される<sup>3)11)</sup>。管状の大腸重複症はきわめてまれで、本邦では41例、欧米で54例の文献的集計がみられるにすぎない<sup>2)10)</sup>。発生部位は本邦集計では盲腸、上行結腸などの右半結腸に多くみられ、S 状結腸は7例みられる<sup>10)</sup>。管状の重複腸管は正常大腸壁と全く同一であるのが特徴である<sup>11)</sup>。腸間膜との関係では自験例が S 状結腸の腸間膜側から分岐して、辺縁動脈を共有していたが、報告例をみても、本邦では腸間膜側18例、反対側9例と腸間膜側に多いのに対し、欧米ではおのおの12例で差はみられていない<sup>2)10)</sup>。消化管重複症は発生学的には hindgut 由来の臓器の奇形であるために、尿路、性器、消化器、骨格、脊髄系と多器官にわたる重複奇形の合併の頻度が高い。大腸重複症においては本邦では48~60%とされている<sup>10)12)</sup>。また重複膀胱症例の41%に大腸重複症の合併がみられている<sup>2)</sup>。したがって、本症は合併する奇形の程度と発生部位によりその症状と発症年齢にかなりの差異がみられるが、生下時すでに生命維持困難に至らしめる場合と、自験例のように生後の生長に対してほとんど影響なく成人に至る場合との両者が存在するようである。その頻度を大腸重複症でみると、欧米文献で新生児39%に対し17歳以上が14%<sup>2)</sup>、本邦文献では1歳未満18%、15歳以上39%である<sup>10)</sup>。このうち合併奇形を有する乳幼児死亡率は20~40%ときわめて高く<sup>2)</sup>、本邦においても大腸の複数の領域にまたがって発生した症例の75%は15歳未満で、単一領域に発生したものよりも発生年齢が有意に低かったとされている<sup>10)</sup>。

管状の大腸重複症には特異的な臨床症状がなく、無症状に経過することが多いが、一般的な症状としては腹部膨満、嘔吐、腫瘤触知、腹痛、下血などがあげられている<sup>2)8)</sup>。診断は注腸造影で重複腸管を描写することにある。血管造影は腸間膜血管系の辺縁動脈まで共有しているために異常を指摘することは困難である。また本症は重複腸管に異所性胃粘膜を伴うことがあり、<sup>99m</sup>Tc シンチグラムは有用である<sup>13)</sup>。下部大腸の場合は泌尿生殖器や下部脊椎の奇形を伴うことが多いため、本症の存在を疑って検索をすすめる必要があると思われる。自験例では不完全重複膀胱の膀胱鏡的所見と仙骨の2分脊椎がみられたが、診断のきっかけとはならなかった。不完全重複膀胱は術中所見で外観上は著変がないため一般に確診が困難であり<sup>14)</sup>、本例は内視鏡的所見で疑診された。気尿の発症原因は不明であ

るが、重複腸管の盲端に腸管内容が停滞し、感染、炎症を慢性的に繰り返しているうちに膀胱との瘻孔を形成したものと推察された。術前検査で瘻孔の確認ができなかったが、これは、瘻孔が比較的小きかったこと、瘻孔部の膀胱・腸管壁の肥厚に加えて不完全重複膀胱を示唆する膀胱後壁の隆起がみられ、さらに多量の気泡と尿混濁により確実な視野が得られなかったことが反省された。

治療は重複結腸の切除が基本である。重複結腸には炎症、瘻孔、穿孔<sup>15)</sup>、出血などの合併症のほか、癌の発生報告もみられる<sup>16)</sup>。本邦の文献では 7 例にみられているが<sup>10)</sup>、重複大腸の癌発生頻度が正常大腸に比べて高いとの報告には接しなかった。いずれにしても、これらの合併症を考慮すると、近接消化管との吻合や内瘻形成術などの術式は新生児や全身状態不良例を除いては成人例では避けるべきと考える。切除に際しては同一血管支配の関係から隣接腸管を含めて切除すべきとの報告もみられる<sup>12)</sup>。しかし、自験例では共有する辺縁動脈を温存して、*vasa recta* を切離することで重複腸管の分離が容易にできたために合併切除の必要はなかった。

本論文の要旨は第 43 回日本消化器外科学会総会 (1994 年、東京) において報告した。

#### 文 献

- 1) Ladd WE, Gross RE: Surgical treatment of duplications of the alimentary tract: Enterogeneous cysts, enteric cysts or ileum dupliex. *Surg Gynecol Obstet* 70 : 295—307, 1940
- 2) Yousefzadeh DK, Bickers GH, Jackson JH Jr et al: Tubular colonic duplication—review of 1876—1981 literature. *Pediatr Radiol* 13 : 65—

- 71, 1963
- 3) Gross RE: The surgery of infancy and childhood. Saunders, Philadelphia, 1953, p221—245
- 4) Lews FT, Thyng FW: The regular occurrence of intestinal diverticula in an embryo of the pig, rabbit and man. *Am J Anat* 7 : 505—509, 1952
- 5) Bremer JL: Diverticula and duplications of intestinal tract. *Arch Pathol* 38 : 132—140, 1944
- 6) Veeneklass GMH: Pathogenesis of intrathoracic gastrogenic cysts. *Am J Dis Child* 83 : 500—507, 1952
- 7) Bentley JFR, Smith JR: Developmental posterior enteric remnants and spinal malformations, the split notochord syndrome. *Arch Dis Child* 35 : 76—86, 1960
- 8) 長嶺信夫, 宮城 靖, 遠藤 巖ほか: 消化管重複症. *外科診療* 19 : 466—471, 1977
- 9) 田村蛟二: 希有なるイレウスの原因: 腸管膿瘍による腸管閉塞症の 1 例. *中外医事新報* 1033 : 440—445, 1923
- 10) 梅本俊治, 小平 進, 寺本龍生ほか: 大腸重複症—症例報告ならびに本邦報告例の統計的考察—。日本大腸肛門病学会誌 43 : 438—442, 1990
- 11) Kuttra JJ, Dotts WJ: Duplication of the large bowel. *Radiology* 113 : 310—315, 1971
- 12) 内山雅之, 団野 誠, 齊藤幸夫ほか: 横行結腸重複症の 1 例—本邦大腸重複症 54 例の検討—。日臨外医会誌 51 : 548—551, 1990
- 13) 鈴木祐一, 竹田 伸, 笠井保志ほか: 横行結腸重複症の 1 例. *外科診療* 27 : 110—113, 1985
- 14) Uhlir K: Rare malformation of the bladder. *J Urol* 99 : 53—58, 1968
- 15) Ryman FC, Glenn JD, Moazam F: Spontaneous perforation of a colonic duplication. *Dis Colon Rectum* 26 : 287—289, 1983
- 16) Heibert MC, Machall KG, HIMAL HS et al: Carcinoma arising in a duplicated colon. Case report and review of literature. *Br J Surg* 60 : 981—982, 1973

### Duplication of the Sigmoid Colon in an Adult —Report of a Case—

Takatoshi Shimoyama, Kiyoomi Nishikawa, Khoji Azuma, Hiroshi Hisano,

Seiji Honjo, Seiji Matsuo and Harumi Kida

Department of Surgery, National Ureshino Hospital

Duplication of the colon and rectum in the adult is a rare anomaly. A 26-year-old man with recurrent episodes of pneumatouria and lower abdominal pain visited our hospital. Barium enema showed a duplicated colon at the sigmoid colon which ended blindly in the pelvis. Cystoscopy revealed incomplete duplication of the urinary bladder, but the communication between the urinary bladder and the duplicated colon was not detectable on cystography. X-ray of the vertebral column showed spina bifida of the sacrum. Resection of the duplicated colon on the mesenteric side of the sigmoid colon and the partial resection of the urinary bladder were performed. The resected specimen showed a tubular duplicated colon measuring 30 cm in length which had histologically normal structure of the colonic wall.

**Reprint requests:** Takatoshi Shimoyama Department of Surgery, National Ureshino Hospital Ureshinocho, Fujitsugun, Saga, 843-03 JAPAN