

## 糞線虫症に起因すると考えられた門脈ガス血症の2例

那覇市立病院外科, 北部地区医師会病院外科\*

照屋 剛 島袋 誠守\* 古堅 智則 平良 一雄  
宮里 浩 久高 学 山城 和也 与儀実津夫

門脈ガス血症はまれで予後不良であり, 病因もはっきりしていない. 我々は糞線虫症に起因すると考えられた門脈ガス血症の2例を経験した. 症例1は61歳の男性で, 成人T細胞性白血病の加療中, 食欲不振で入院しその後腹痛を認めた. 抗HTLV-1抗体陽性のため, 便培養を行い糞線虫が検出された. 入院4日目に敗血症性ショックを呈し, 腹部CTで肝内門脈ガス像と小腸拡張を認め, 門脈ガス血症とイレウスと診断した. Thiabendazole投与などの保存的治療で軽快した. 症例2は82歳の女性で, 腹痛で入院した. 腹部CTで腸管拡張と肝内門脈ガス像を認めた. 保存的治療が無効で腸管壊死による門脈ガス血症と診断し, 入院3日目に緊急手術を行った. 回腸末端部に小腸壊死を認め, 約80cm切除した. 術後便培養で糞線虫陽性となり, thiabendazole投与を行い経過良好であった. 糞線虫症を伴った門脈ガス血症の報告はこれまでなく, 保存的と手術治療が有効であった.

### はじめに

門脈ガス血症はまれで予後不良とされる. 我々は糞線虫症に起因すると考えられた門脈ガス血症の2例を経験した. 今回, おのおのに対して保存的および手術治療を行い救命しえたので若干の文献的考察を加えて報告する.

### 症 例

症例1: 61歳, 男性

主訴: 食欲不振

家族歴: 特記事項なし.

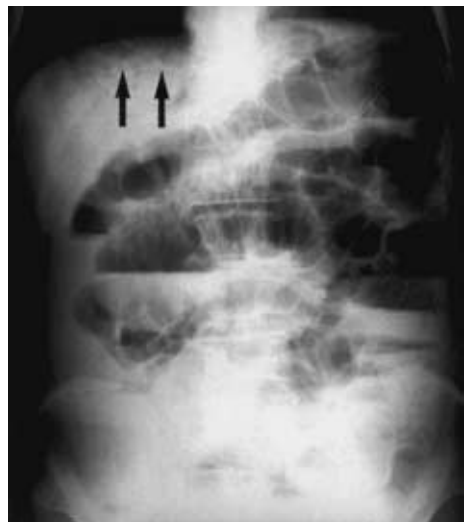
既往歴: 糖尿病, 成人T細胞性白血病

現病歴: 成人T細胞性白血病に対して免疫抑制剤やステロイドを投与中であった. 食欲不振があり加療目的にて内科へ入院となった.

入院時現症: 身長164cm, 体重50kg. 血圧140/90mmHg, 体温37.2で意識は明瞭であった. 眼瞼および球結膜に貧血や黄疸はなく, 表在リンパ節腫脹も認めなかった. 腹部に自発痛や圧痛は認めず, 腸雑音は減弱していた.

入院時検査所見: 血液・生化学検査でCRP値(16.2mg/dl)や血糖値(298mg/dl)の上昇と血清アルブミン値(2.6g/dl)低下を認めた以外は正常で, 抗HTLV-

Fig. 1 Plain abdominal X-ray of case 1 showing gas in the intrahepatic portal vein (arrows) and dilation of small intestine.



1抗体が陽性であった.

入院2日目より腹満感や嘔吐が出現し, イレウスの診断にて外科紹介となった. その際, 圧痛は軽度で腹膜刺激症状は認めなかった.

腹部単純X線検査所見: 小腸ガスの鏡面形成像を認め, 横隔膜直下には肝内ガスを思わせる透亮像も認めた (Fig. 1).

Fig. 2 Abdominal CT scan of case 1 showing hepatic portal venous gas(HPVG) in hepatic lobes[ top ]and gas in the wall of the colon ( arrow [ bottom ])

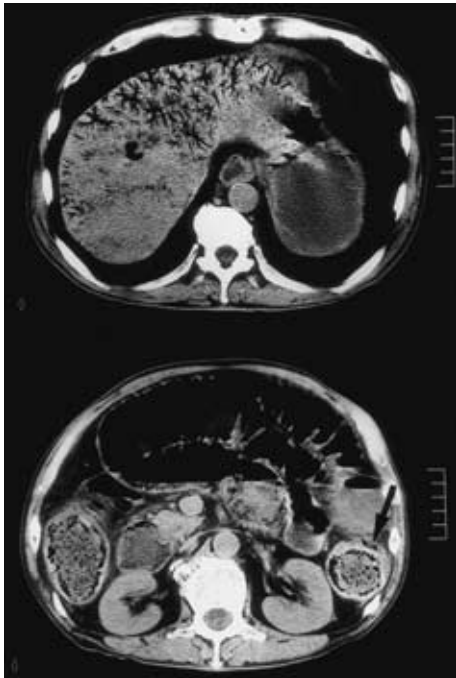


Fig. 3 Abdominal CT scan of case 1 showing the improvement of HPVG in hepatic lobes [ top ] and the disappearance of gas in the wall of the colon [ bottom ]( 60 hours after the first CT ( Fig. 2 ))



腹部 CT 検査所見：CT 検査で肝内門脈に樹枝状のガス像や小腸拡張を認め、さらに大腸壁内ガス像も認め腸管囊腫様気腫が示唆された ( Fig. 2 ). 入院 4 日目に体温が 38 まで上昇し、血圧も 70/50mmHg まで低下しショック状態を呈したため、昇圧剤投与や酸素吸入を開始した。検査所見と臨床経過より門脈ガス血症と原因不明の絞扼性イレウスを疑った。腸管壊死も考えられたが全身状態が悪く手術による救命は困難と判断し、保存的治療の継続とイレウス管により腸管減圧を開始した。一方、患者が抗 HTLV-1 抗体陽性であったため、沖縄県に時々散見される糞線虫症によるイレウスや付随した敗血症も考え、便培養を行ったところ陽性であった。その後は抗生剤や  $\gamma$  グロブリンも投与しながら、thiabendazole をイレウス管より 1 クール ( 1.000mg/日  $\times$  3 日間 ) 投与した。以上の処置により全身状態の改善を認め、thiabendazole 投与 3 日目には排ガスを認めた。一時的に白血球数・LDH 値上昇や肝胆道系酵素の軽度上昇があったが治療後に正常化した。投与 6 日後の CT 検査では門脈ガス像は消失し、イレウスや腸管壁の浮腫状変化も改善した ( Fig. 3 ). 一

方、thiabendazole 投与後の便培養で糞線虫が検出され、合計 3 クール追加投与しその後は検出されなかった。

その後の経過は良好で、thiabendazole 投与 8 日目には食事開始となり軽快退院した。退院後の 1 年 6 か月目に、成人 T 細胞性白血病の増悪による感染症のため死亡した。

症例 2：82 歳，女性

主訴：腹痛

家族歴：特記事項なし。

既往歴：高血圧症，糖尿病

現病歴：突然の腹痛が出現し入院となった。

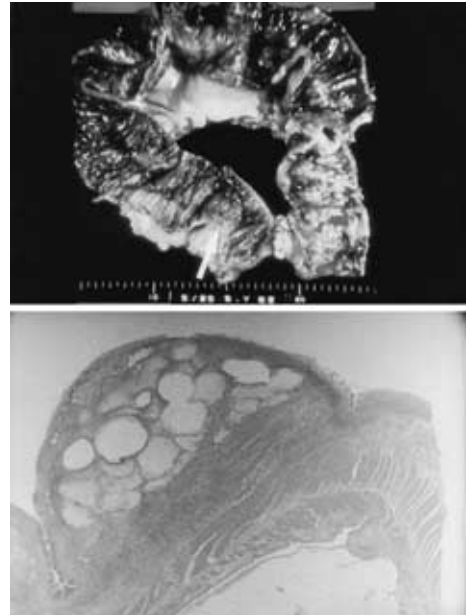
入院時現症：身長 145cm，体重 45kg。血圧 105/60 mmHg，体温 36.6 で意識明瞭であった。臍部を中心に自発痛と圧痛を認めたが、反跳痛や筋性防御はなく腫瘍も触知しなかった。

入院時検査所見：血算・生化学検査では白血球数 ( 11,900/mm<sup>3</sup> ) や CRP 値 ( 4.5mg/dl )，血糖値 ( 221mg/dl ) の上昇や血清アルブミン値 ( 2.6g/dl ) 低下を認めた。糞線虫検査は実施されてなく、抗 HTLV-1 抗体は陰性

Fig. 4 Abdominal CT scan of case 2 showing HPVG in hepatic lobes [ top ] and gas in the mesenteric veins ( arrows ) bottom ]



Fig. 5 Resected specimen of case 2 : mucosal necrosis and edema of small intestinal wall [ top ] Macroscopic finding of case 2 ( arrow ) showing the mucosal necrosis and various sizes of air-cysts in the submucosal layer [ bottom ] HE stain  $\times 8$  ]



であった。まず、絶飲食下で保存的治療を開始したが、入院2日目には嘔吐がありイレウスを疑った。

腹部単純X線検査所見：小腸ガスの鏡面形成を認めたが、肝内門脈ガスは認めなかった。

腹部CT検査所見：CT検査では、肝内門脈ガス像や小腸拡張を認め、腸間膜の血管内にもガス像を認めた (Fig. 4)。腹水はなかった。

以上よりイレウスと門脈ガス血症と診断したが、嘔吐以外に腹部所見は軽く、腸管壊死なども考慮しながら保存的治療を継続した。入院60時間後に腹部症状の増悪や発熱を認めた。その際のCT検査で肝内門脈ガス像は消失していたが、多量の腹水を認めた。その時点で腸管壊死と判断して緊急手術を行った。

手術所見：開腹すると大量の漿液性腹水を認め、回腸末端の約15cm部位から口側約80cmにかけて腸管は浮腫状になり、散在性に暗赤色を呈していた。腸管壊死と判断し、病変部腸管を切除し二層吻合にて再建した。

摘出標本および病理組織学的所見：腸管壁は浮腫状で粘膜の壊死が主体であった (Fig. 5)。HE染色では粘

膜はびらん壊死となり、全層性に好中球浸潤を認めた。粘膜固有層から粘膜下層にかけては多数の気泡を認め、腸管囊腫様気腫の状態であった (Fig. 5)。

術後経過：術後の白血球分画で好酸球増加 (61%) があり、糞線虫症を疑い便培養を行ったところ陽性であった。術後12日目より thiabendazole 内服を1クール (1,000mg/日  $\times$  3日間) 開始した。その後も糞線虫が検出され、更に1クール投与し糞線虫陰性化を認めた。以後の経過は良好であった。術後約3年経過したが、糞線虫症の再発なく経過している。

### 考 察

門脈ガス血症 (hepatic portal venous gas; 以下、HPVG と略記) は、肝内や肝外門脈内にガス像が出現する種々の消化器疾患で見られる予後不良の徴候の一つと考えられている。1955年に Wolfe と Evans<sup>1)</sup> が腸管壊死を伴う6例の新生児を報告したのが最初で、成人例では1960年に Susman ら<sup>2)</sup> により最初の報告が成されていた。本邦では福島ら<sup>3)</sup> の報告以来、文献検索上で有賀ら<sup>4)</sup> の報告を含め約100例程である。HPVGの原因はさまざまに腸管壊死を伴うことの多い、重篤

な疾患の際に認められる病態である。原疾患としては虚血性大腸炎が最も多く<sup>4)</sup>、その他に上腸間膜動脈閉塞症による腸管壊死、新生児壊死性腸炎、大腸憩室症、潰瘍性大腸炎、クローン氏病、腸閉塞、急性膵炎、腹腔内膿瘍、肝移植後など多彩である。発生原因として Liebman ら<sup>5)</sup>は、①粘膜障害での粘膜防御機構の破綻②腸管内圧の上昇③ガス産生菌の門脈内移行による関与をあげている。その後の研究・報告で①と②を合わせた物理的ガス透過説と③による敗血症説の2つが考えられている。

本疾患の合併症として腸管囊腫様気腫 (pneumatosis cystoides intestinalis; 以下、PCI と略記)があり、腸管壁内に気体が囊腫様に認められる疾患である。発生機序は腸管内圧の増加と粘膜損傷によるとされ、腹部CTでは腸管壁内に貯留するガス像として描出される<sup>6)</sup>。しかし、PCIがHPVGの前段階状態が否かについては解明されていないのが現状である<sup>7)</sup>。PCIのみで腸管の通過障害や壊死、出血などの合併症がなければ外科的処置は必要ないとされる。病理組織学的所見としてのPCIは、粘膜下層と漿膜下層を中心にみられる大小不同の空泡が特徴であり<sup>7)</sup>、症例2の切除標本でも同様な所見が認められた。HPVGの症状<sup>5)</sup>は、腹痛・嘔吐・下血・下痢・腹部膨満などであるが、これらの症状は特徴的とは言い難く、症状からのHPVGの判定は困難である。X線での特徴は肝辺縁2cm以内に認められるガス像とされている<sup>8)</sup>。腹部単純X線で門脈ガスの描出が困難でも、腹部CTでは門脈内のガス像がair density areaとして肝の末梢まで認められ、早期の確定診断に優れ有用性が報告されている<sup>9)</sup>。

以前、HPVG症例は75%と高い死亡率を呈する予後不良であり<sup>5)</sup>、本邦報告例でも46.8と高率<sup>4)</sup>、ほとんどが腸管壊死を伴う敗血症により死亡していた。よって、手術による壊死腸管切除が第一治療と考えられてきた<sup>10)</sup>。しかし、諸検査の診断能の向上とともに、一般に全身状態が良く24時間以内に門脈ガスの消失する症例では生存例の報告もあり<sup>11)</sup>、発見されたら一律に手術の対象であるとの考えは見直されてきている。症例1での全身状態の悪化は結果的には腸管壊死ではなく、糞線虫症による腸管炎症とそれに付随した感染症による敗血症性ショックであったと推測され、HPVG原因の敗血症説の関与が考えられた。

糞線虫症 (strongyloidiasis) は腸管寄生虫である糞線虫 (strongyloides stercoralis) によって惹起される疾患である。本邦では九州南部や沖縄県をはじめとする南

西諸島が浸淫地で、一般住民の11.2%が糞線虫感染患者との報告もある<sup>12)</sup>。糞線虫症は自家感染により数十年間無症状で寄生状態を続けることがあり、重症化すると播種性糞線虫症を引き起こす<sup>13)</sup>。特異的症狀はなく、下痢・軟便・腹痛・全身倦怠感・体重減少などが主である<sup>13)</sup>。腹部X線上で腸管に多量のガス像を認めることが多く、重症例では麻痺性イレウスを呈する。播種性糞線虫症とは免疫不全状態において、ライフサイクルで通過する消化管や肺以外の臓器、例えば肝臓や胆道、髄液などに糞線虫が播種した場合をいう。その際、腸管から持ち込んだグラム陰性桿菌などの腸内細菌群による肺炎や敗血症、化膿性髄膜炎などを合併し死に至ることがあり、死亡率は40~60%と高い<sup>13)</sup>。症例1は基礎疾患として成人T細胞性白血病があり治療中であつたため、より免疫能が低下した状態であつたと推測される。そのことが日和見感染を生じ、結果的に播種性糞線虫症による敗血症性ショックを呈したのではないかと考えられた。症例2では術後の便培養で糞線虫と診断された。摘出標本で虫体や虫卵の証明はできなかったが、糞線虫が腸管から血管やリンパ管内へ入り込み炎症や血流障害を招き、その結果として腸管壊死を生じイレウスや腸管壊死とHPVGを引き起こしたのかもかもしれない。

症例1のごとく糞線虫感染陽性者は、陰性者より抗HTLV-1抗体の陽性率が有意に高く、抗HTLV-1抗体陽性者は陰性者より糞線虫陽性率が有意に高いとされる<sup>13)</sup>。その理由としてはHTLV-1感染による免疫能低下により糞線虫が感染しやすく、体内での増殖も容易となり陽性率が高くなると考えられている<sup>13)</sup>。抗HTLV-1抗体測定とともに、好酸球数やIgE上昇、血清アルブミン値の低下も糞線虫症診断のきっかけとなりうる。しかし、特異的ではないので、便検査は必須であろう。

糞線虫症の治療薬はthiabendazoleが一般的である。作用機序は不明で、蠕虫に特異的な酵素であるフマル酸還元酵素を阻害するとされる。投与後の1~2時間後に血中濃度が最高となり24時間では血中から消失される。25~50mg/kg、分2,3日間連用では再発が多いので2~3クールが必要とされ、駆虫率は高いが副作用も強く投与においては慎重を要する。自験例では症例1・2ともthiabendazoleの追加投与で糞便からの虫体と虫卵の消失を認め、薬剤による副作用もなかった。原因不明のイレウス症例では原因検索を行い、緊急手術による原因除去を行う準備をしながら、糞線

虫症と診断されれば全身状態改善や糞線虫症治療を行うことも可能な場合があると考えられた。

一方で、HPVGに合併する腸管壊死の確定診断は開腹以外にないとされる<sup>10)</sup>。その点で症例1のイレウスは糞線虫症に対する治療を含めた保存的治療が功を奏したが、たとえショック状態でも腸管壊死を考えたならば手術を選択すべきではなかったか、症例2でもHPVGと診断した時点で手術を行うべきではなかったか、結果は良かったが今後の課題としての反省点も残ったと思われた。

### 文 献

- 1) Wolfe JN, Evans WA : Gas in the portal veins of the liver in infants. *Am J Roentgenol* 74 : 486-489, 1955
- 2) Susman N, Senturia HR : Gas embolization of the portal venous system. *Am J Roentgenol* 83 : 847-850, 1960
- 3) 福島恒男, 阿部哲夫, 鬼頭文彦ほか : 門脈ガス血症 腸間膜血行不全との関連について . *臨外* 29 : 1123-1126, 1974
- 4) 有賀浩子, 野池輝匡, 河西 秀ほか : 門脈ガス血症をきたした回復壊死の1治験例 . *日消外会誌* 33 : 382-385, 2000
- 5) Liebman PR, Patten MT, Manny J et al : Hepatic portal venous gas in adult : etiology, pathophysiology and clinical significance. *Ann Surg* 187 : 281-287, 1978
- 6) Scheidler J, Stabler A, Kleber G et al : Computed tomography in pneumatosis intestinalis : differential diagnosis and therapeutic consequence. *Abdom Imaging* 20 : 523-528, 1995
- 7) 福田淑一, 月岡一馬, 川崎史寛ほか : 門脈ガス血症の4救命例. *日消外会誌* 29 : 1697-1701, 1996
- 8) Sisk PB : Gas in the portal venous system. *Radiology* 77 : 103-107, 1961
- 9) 杜若幸子, 杜若陽祐, 渡邊克司 : 腸管気腫を伴った門脈ガス血症の1例 CT検査の有用性について . *臨放線* 37 : 511-514, 1992
- 10) 三好和也, 松井武志, 雁木淳一ほか : 門脈ガス血症を伴った急性上腸間膜動脈閉塞症の1手術治験例 . *日消外会誌* 28 : 77-81, 1995
- 11) Merine D, Fishman EK : Uncomplicated portal venous gas associated with duodenal perforation following ERCP : CT features. *J Comput Assist Tomogr* 13 : 138-139, 1989
- 12) Asato R, Nakasone T, Yoshida C et al : Current status of strongyloides infection in Okinawa, Japan. *Jpn J Trop Med Hyg* 20 : 169-173, 1992
- 13) 齊藤 厚 : 糞線虫症のあたらしい診断法と治療法 . *感染症誌* 70 : 876-877, 1996

### Two Cases of Hepatic Portal Venous Gas due to Strongyloidiasis

Tsuyoshi Teruya, Masamori Shimabuku\*, Tomonori Furugen, Kazuo Taira, Hiroshi Miyazato, Manabu Kudaka, Kazuya Yamashiro and Mitsuo Yogi

Department of Surgery, Naha City Hospital

\*Department of Surgery, Nothern Medical Center

Hepatic portal venous gas (HPVG) is a rare condition with a poor prognosis whose pathogenesis is not clearly understood. We present 2 cases of HPVG apparently associated with strongyloidiasis. Case 1, a 61-year-old man admitted with appetite loss due to chemotherapy for adult T cell leukemia, suffered abdominal pain after admission. He had a history of HTLV-1 infection and strongyloides infection was found by stool culture. He suddenly went in septic shock on day 4 after admission and abdominal computed tomography (CT) showed peripheral air distribution in the hepatic portal vein and dilation of the small intestine, which we diagnosed as HPVG and ileus. Intensive chemotherapy including thiabendazole was started and he recovered without surgery. Case 2, an 82-year-old woman admitted for abdominal pain was shown by abdominal CT to have intestinal dilation and HPVG. As conservative therapy was not effective, we conducted an emergency laparotomy about 3 days after the onset under a strong suspicion of bowel necrosis with HPVG. The ileum end was necrotized and 80 cm of the ileum segment was resected. Postoperative stool culture showed positive strongyloides infection. Postoperative intensive therapy including thiabendazole, with good results. HPVG associated with strongyloides has not been reported, to our knowledge, and our cases were successfully treated by conservative and surgical measures.

Key words : hepatic portal venous gas, strongyloidiasis, sepsis

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 35 : 663-667, 2002]

Reprint requests : Tsuyoshi Teruya Department of Surgery, Naha City Hospital  
2-31-1 Furujima, Naha City, 884-5111 JAPAN