

症例報告

総腸間膜症および腸管重複嚢腫に続発した成人中腸軸捻転症の1例

相澤病院外科, 同 病理科*

森 周介 岸本 浩史 田内 克典 樋口佳代子*

腸回転異常と空腸腸管重複嚢腫の複合発生異常に続発した上腸間膜軸捻転症の1成人例を報告する。症例は20歳の男性で、腹痛を主訴に外来受診した。腹部CTで肝下面に嚢胞状腫瘤と上腸間膜動静脈を軸としたWhirl signを認め、腸間膜軸捻転症による絞扼性腸閉塞の診断で緊急開腹手術を施行した。術中所見では、盲腸および上行結腸が後腹膜に固定されておらず上腸間膜動静脈を軸として腸管が時計方向に2回転軸捻転を来し、空腸から横行結腸まで虚血に陥っていた。捻転解除により腸管の色調は改善した。さらに、トライツ靱帯より約20cmの空腸腸間膜に約7cm大の嚢胞性病変を認め、この部位の小腸部分切除を行った。上行結腸は固定せずそのまま虫垂を切除した。切除標本の肉眼検査所見では小腸間膜に腸管との交通のない単房性嚢胞を認めた。組織学的には嚢胞壁に平滑筋層が存在し、内腔は呼吸上皮に類似した組織に覆われていた。腸管重複嚢腫と診断した。

はじめに

総腸間膜症は胎生期の発生過程における腸回転異常によって起こる後腹膜への腸間膜固定不全であり、新生児に軸捻転によるイレウスで発症することが多い。腸管重複嚢腫もまた同様に胎生期の異常により起こるが、その形態や組織学的検査所見は多岐にわたる。成人の続発性腸間膜軸捻転症はまれであり、これら複合奇形に続発しかつ腸管重複嚢腫に稀有な組織学的検査所見を認めた症例を経験したので報告する。

症 例

患者：20歳，男性

主訴：腹痛

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：12時間前に発症した上腹部痛を主訴に来院した。

入院時現症：腹部は平坦，軟。上腹部に圧痛あり。反跳痛，筋性防御を認めず。

入院時検査所見：血算，生化学検査に異常所見なし。

腹部X線写真：異常小腸ガス像と腸管の集簇，右結腸ガス像の消失，左方偏位を認めた(Fig. 1)。

腹部造影CT：肝下面に74×55mm大の嚢胞状腫瘤を認め，さらに腸間膜が根部より時計方向に2回転するいわゆるWhirl signを認めた(Fig. 2)。

腸間膜軸捻転症による絞扼性腸閉塞の診断で緊急開腹手術を施行した。

手術所見：上行結腸が後腹膜に固定されておらず，上腸間膜動静脈を軸として腸管が時計方向に2回転軸捻転を来し，空腸から横行結腸まで虚血に陥っていた(Fig. 3A)。捻転解除により腸管の色調は改善した。さらに，トライツ靱帯より約20cmの小腸間膜に7cm大の嚢胞性病変を認め(Fig. 3B)，この部位のみ嚢胞を含め小腸部分切除術を行った。上行結腸は固定せずそのまま虫垂を切除した。

切除標本：肉眼検査所見では小腸間膜に腸粘膜との交通のない単房性嚢胞を認め，内部に褐色泥状の内容物を含んでいた(Fig. 4)。

病理組織学的検査：嚢胞壁に平滑筋層が存在し(Fig. 5A)，内腔は呼吸上皮に類似した上皮に覆われていた(Fig. 5B)。腸管重複嚢腫と診断した。

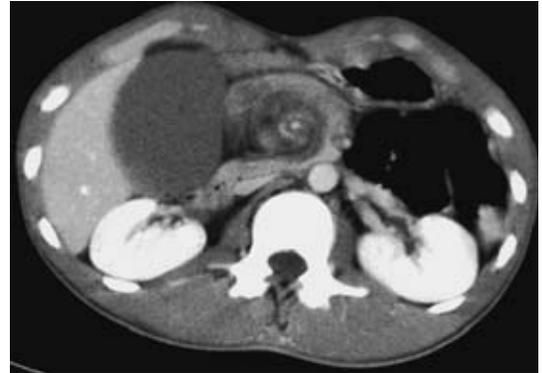
Fig. 1 An abdominal x-ray showed abnormal gas of the small intestine and aggregation of the intestinal gas to the center. Absence of the cecum and the ascending colon in the right abdominal cavity and migration of these to the left upper quadrant were seen.



考 察

腸管重複嚢腫は粘膜、粘膜下層、平滑筋層を有するものと定義され¹⁾、口腔から肛門まですべての消化管で起こりうる²⁾。その発生率はおよそ1万分の1とされる³⁾。腸管重複嚢腫の形態や大きさはさまざまであり、消化管との交通があるものとならないものに区別される⁴⁾。病態として捻転、出血、嚢腫破裂、感染を来すことがあり、腹痛、腹満、嘔吐、下血などで発症する。大きいものでは腹部腫瘍として触知されるが、多くは無症状で経過する⁵⁾⁶⁾。まれに悪性化を認め、他の疾患で手術した場合などで偶然発見された症例については切除が推奨される⁷⁾。また、Holcombら²⁾は101例の腸管重複嚢腫のうち21例の異所性胃粘膜と5例の迷入腭組織を認めたと報告している。検査ではCT、超音波で偶然発見される例が多いが、CTでは造影効果のない嚢胞性腫瘍として描出される⁸⁾。本症例で肝下面に描出された腸管との交通のない嚢胞性病変

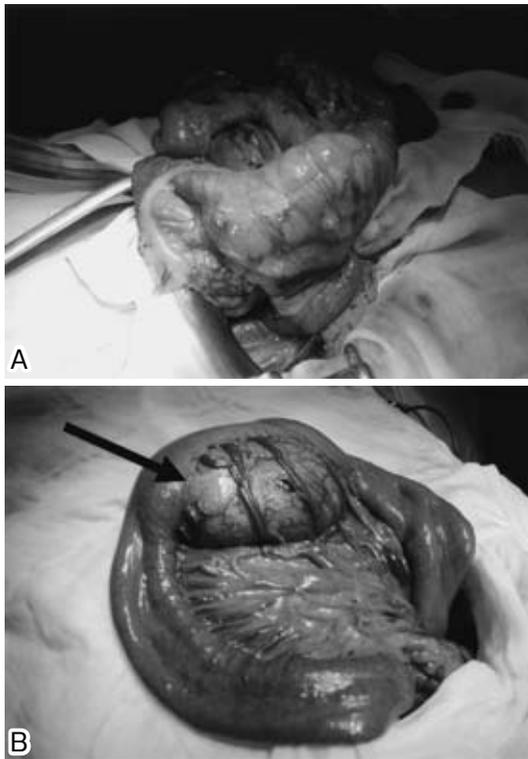
Fig. 2 Enhanced computed tomography showed a 74×55 mm cystic lesion adjacent to the inferior surface of the liver and a whirl sign of the superior mesenteric artery and vein.



は腸管重複嚢腫として特徴的形態を示しており術前診断が可能であった。呼吸器原基は前腸由来で食道、胃などと発生を同じとするが、空腸は中腸由来であり発生学的に原基の異なるものである⁹⁾。嚢腫の内腔は必ずしも嚢腫のある消化管の内腔組織を模倣したものではなく、他部位の消化管上皮である場合や、まれに呼吸器上皮を認めることがある¹⁰⁾。発生部位別頻度としては、回腸、食道、空腸、結腸、胃、虫垂の順で多いとされる⁷⁾。

総腸間膜症は小腸と結腸が共通の遊離腸間膜を有し可動性のある状態であり、胎生期の腸管回転異常や癒着固定異常により生じる。その中でも本症例のような盲腸、上行結腸が後腹膜に固定されない型が最も多い¹¹⁾。総腸間膜症の合併症としては腸軸捻転、腸重積、十二指腸狭窄などがあるが多くは無症候性で、そのため発生頻度は発症頻度に比べてはるかに多く1/10,000と推定される。全発症例の80%が新生児期で残りの大多数が乳幼児期であり、大人になって発見される例はほとんどが他の手術の際に偶然発見されるものである^{11)~13)}。総腸間膜症を認めた場合、腸管固定を推奨する意見もあるが、固定をしても軸捻転症の予防には有効でなくかえって腹痛などさまざまな腹部症状をじゃっ起する可能性があるという理由でこれに否定的な見解もある¹¹⁾¹⁴⁾¹⁵⁾。また、虫垂炎を合

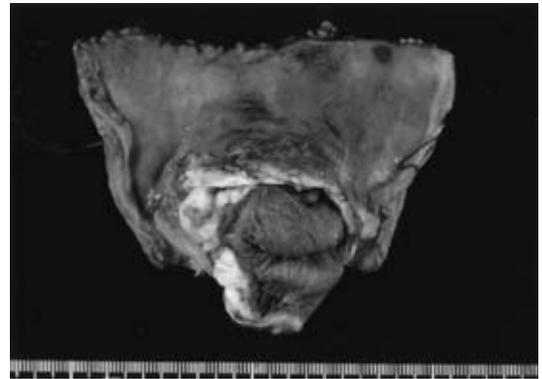
Fig. 3 Operative findings showed the ascending colon was not anchored to the retroperitoneum, and the intestine from the jejunum to the transverse colon had ischemic change with volvulus of 720 degrees rotation clockwise (A). Reduction of volvulus improved ischemia. And there was a solitary cystic tumor (arrow) in the mesentery of the jejunum approximately 20 cm from Treitz's ligament (B).



併すると診断が困難であるため予防的虫垂切除は推奨されている¹³⁾。

腸回転異常は90度で回転が停止した無回転型 (non rotation type) と180度の回転異常型 (malrotation type), 逆回転型 (reversed rotation type) に分類される¹⁶⁾¹⁷⁾。本症例は盲腸, 上行結腸が後腹膜に固定されておらず, 捻転を解除した段階で, これらが自然に左上腹部に位置した。また, 腸間膜根部が完全に遊離しており, トライツ靭帯の形成はなく, 腹膜靭帯 (Ladd 靭帯) は存在せず, 十二指腸狭窄も認めなかった。以上より, 無回転型

Fig. 4 Macroscopic findings showed an 80×70×45 mm solitary cyst on the jejunal mesentery adjoining the alimentary tract without communication, which contained brown muddy fluid.

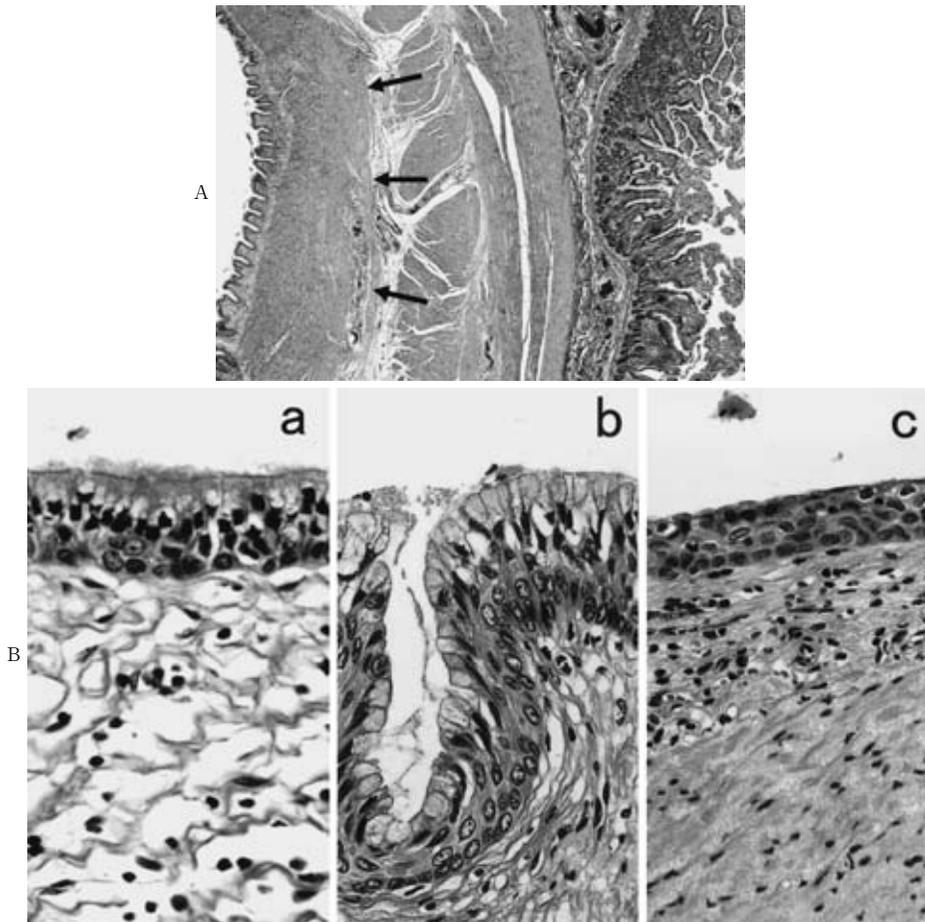


と考えられた。回転異常型では十二指腸下行部が腹膜靭帯 (Ladd 靭帯) によって後腹膜に固定され通過障害で発症することが多く, Ladd 靭帯があれば切離 (Ladd 手術) が一般的である¹⁸⁾。

腸回転異常の検査所見としては腹部単純レントゲンで左腹腔内にもみ結腸ガスを認めることがある¹³⁾。無回転型ではCTで上腸間膜静脈 (superior mesenteric vein; 以下, SMV) が上腸間膜動脈の左側に位置する SMV rotation sign が特徴的である¹⁹⁾。

医学中央雑誌で「総腸間膜症, 腸管重複嚢腫」もしくは「腸回転異常, 腸管重複嚢腫」をキーワードとして1983年から2006年1月までについて検索したところ同様の症例報告を認めなかった。また, MEDLINEで「mesenterium commune, enteric duplication cyst」もしくは「malrotation, enteric duplication cyst」をキーワードとして1966年から2006年1月までについて検索したところ成人での該当文献はなかった。したがって, これらの検索範囲内では成人例として初の報告となる。先にも述べたとおり, 腸管重複嚢腫は腸管軸捻転として発症することがあるが, これは嚢腫が振り子の作用を有し, 捻転のきっかけとなるものと思われる。現在まで中腸軸捻転を合併したという報告はないが, 本症例のように総腸間膜症を伴

Fig. 5 Microscopic findings showed there was a smooth muscle layer (arrows) in the cyst wall lined internally with epithelium analogous to respiratory tract (A), which consisted of ciliated epithelium (a), mucous cells (b), squamous epithelium (c) (B).



う場合、その原因となりうることが示唆された。

腸間膜軸捻転症は広義の小腸軸捻転症である。小腸軸捻転症は死亡率 25.3%~25.9% と高率であり²⁰⁾²¹⁾、迅速な診断と緊急の治療を要する。原発性(原因となる器質的疾患のないもの)と続発性に分類され、その比率は前者 73.3%、後者 26.7% であり²⁰⁾、続発性の原因としては腸回転異常、メッケル憩室、炎症、腫瘍、腸間膜嚢腫、癒着などがある²²⁾。岡田ら²³⁾の報告では成人の続発性小腸軸捻転はまれであり、その集計によれば本邦では現在まで 63 例の報告に限られる。また、吉田ら²⁴⁾の報告では成人の続発性小腸軸捻転 56 例のうち 27 例に腸回転

異常を認めた。小腸軸捻転症は成人の腸閉塞の 1.2~3.6% を占め²⁵⁾²⁶⁾、腸閉塞を認めた際には念頭におかなければならない疾患である。画像所見は特徴的で造影 CT で Whirl sign (渦巻き像)²⁷⁾、血管造影で barber pole sign を認める²⁸⁾。

本症例では腸管重複嚢腫、総腸間膜症、腸間膜軸捻転症のいずれについても特徴的な画像検査所見を認めており診断は困難ではなかった。しかし、小腸、腸間膜軸捻転症は時に腹膜刺激症状を認めないなど症状や所見に乏しく診断が遅れることがあり、わずかでも疑われる際は腹部 CT をはじめとする検査に対し積極的姿勢が必要である。

本症例の要旨は第67回日本臨床外科学会総会(2005年11月,東京)で発表した。

文 献

- 1) Ros PR, Olmsted WW, Moser RP Jr et al : Mesenteric and omental cysts—histologic classification with imaging correlation. *Radiology* **164** : 327—332, 1987
- 2) Holcomb GW 3rd, Gheissari A, O'Neill JA Jr et al : Surgical management of alimentary tract duplications. *Ann Surg* **209** : 167—174, 1989
- 3) Simsek A, Zeybek N, Yagci G et al : Enteric and rectal duplications and duplication cysts in the adult. *ANZ J Surg* **75** : 174—176, 2005
- 4) Youngblood P, Blumenthal BI : Enteric duplication cyst. *South Med J* **76** : 670—672, 1983
- 5) Chou YH, Tiu CM, Lui WY et al : Mesenteric and omental cysts—an ultrasonographic and clinical study of 15 patients. *Gastrointest Radiol* **16** : 311—314, 1991
- 6) Caropreso PR : Mesenteric cysts—a review. *Arch Surg* **108** : 242—246, 1974
- 7) O'Donnell PL, Morrow JB, Fitzgerald TL : Adult gastric duplication cysts—a case report and review of literature. *Am Surg* **71** : 522—525, 2005
- 8) Kelly RB, Mahoney PD, Johnson JF et al : CT demonstration of an unusual enteric duplication cyst. *J Comput Assist Tomogr* **10** : 506—507, 1986
- 9) Sadler TW : ラングマン人体発生学, 第6版. 医歯薬出版, 東京, 1991, p207—214
- 10) Gorsler C, Schier F, Danzer E : Ciliated epithelium in a midgut enteric duplication—a case report. *Eur J Pediatr Surg* **11** : 136—138, 2001
- 11) 阿久津哲造 : 総腸間膜症について～日本における本症の統計的観察. *臨外* **8** : 585—593, 1953
- 12) Tobinaga S, Morinaga A, Sajima S et al : Transverse to descending colon volvulus and megacolon with mesenterium commune : report of a case. *Surg Today* **34** : 875—877, 2004
- 13) 石井博道, 森村 玲, 崔 聡仁ほか : CTにて術前診断した成人腸回転異常による中腸軸捻転症の1例. *日臨外会誌* **65** : 1846—1849, 2004
- 14) 田村昌也, 木元文彦, 清崎克美ほか : 総腸間膜症に小腸癌を併存した再発性腸閉塞症の1例. *日消外会誌* **33** : 90—93, 2000
- 15) 三輪晋智, 田川 努, 伊藤重彦ほか : 成人腸回転異常による小腸軸捻転症の1例. *長崎医学会誌* **73** : 105—108, 1998
- 16) Wang CA, Welch CE : Anomalies of intestinal rotation in adolescents and adults. *Surgery* **54** : 839—855, 1963
- 17) 松岡 潔 : 腸管回転異常症(Malrotation). *高知中病医誌* **12** : 1—26, 1985
- 18) Ladd WE : Surgical diseases of the alimentary tract in infants. *N Engl J Med* **215** : 705—708, 1936
- 19) Nichols DM, Li DK : Superior mesenteric vein rotation : a CT sign of midgut malrotation. *Am J Roentgenol* **141** : 707—708, 1983
- 20) Tiwari VS, Gupta HC, Varma MM et al : Volvulus of the small intestine. *Int Surg* **67** : 476—478, 1982
- 21) Gulati SM, Grover NK, Tagore NK et al : Volvulus of the small intestine in India. *Am J Surg* **126** : 661—664, 1973
- 22) Iwuagwu O, Deans GT : Small bowel volvulus—a review. *J R Coll Surg Edinb* **44** : 150—155, 1999
- 23) 岡田健一, 貞廣莊太郎, 石川健二ほか : 腸間膜嚢胞により誘発されたと考えられる成人小腸軸捻転症の1例. *日臨外会誌* **66** : 853—856, 2005
- 24) 吉田哲也, 藤本高義, 戎井 力ほか : 外傷性小腸壁内血腫の保存的治療中に発症した続発性小腸軸捻転の1例. *日消誌* **100** : 1206—1211, 2003
- 25) 加納隆之, 北村正次, 岡本篤武ほか : 成人の小腸軸捻転症4例の検討. *日臨外医会誌* **49** : 665—672, 1988
- 26) 磯谷正俊, 北島正是, 田近徹也ほか : 小腸捻転イレウス23例の検討. *外科* **6** : 557—562, 1979
- 27) Fisher JK : Computed tomographic diagnosis of volvulus in intestinal malrotation. *Radiology* **140** : 145—146, 1981
- 28) Buranasiri SI, Baum S, Nusbaum M et al : The angiographic diagnosis of midgut malrotation with volvulus in adults. *Radiology* **109** : 555—556, 1973

Adult Midgut Volvulus Secondary to Mesenterium Commune and Enteric Duplication Cyst : A Case Report

Shusuke Mori, Hirofumi Kishimoto, Katsunori Tauchi and Kayoko Higuchi*
Department of Surgery and Department of Pathology*, Aizawa Hospital

We report a case of adult superior mesenteric volvulus secondary to malrotation of the intestine and jejunal enteric duplication cyst. A 20-year-old man seen for abdominal pain was found in enhanced computed tomography (CT) to have a cystic lesion adjacent to the inferior surface of the liver and a whirl sign of the superior mesenteric artery and vein, so we diagnosed the case as strangulation ileus due to volvulus of the superior mesentery, conducting emergency laparotomy. We found that the ascending colon was not anchored to the retroperitoneum, and the intestine from the jejunum to the transverse colon showed ischemic change with volvulus of 720 degrees rotation clockwise. Reduction of volvulus improved ischemia. We also found a 7cm cyst in the mesenterium of the jejunum approximately 20cm from Treitz's ligament, necessitating partial resection of the jejunum including the cyst. We conducted appendectomy but did not fix the ascending colon to the retroperitoneum. Macroscopic findings showed a solitary cystic tumor on the jejunal mesentery adjoining the alimentary tract but without communication. Microscopic findings indicated a smooth muscle layer in the cyst wall lined internally with epithelium analogous to the respiratory tract. We diagnosed this as enteric duplication cyst.

Key words : mesenterium commune, enteric duplication cyst, volvulus

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 40 : 107—112, 2007]

Reprint requests : Shusuke Mori Department of Surgery, Aizawa Hospital
2-5-1 Honjou, Matsumoto, 390-8510 JAPAN

Accepted : May 31, 2006