

症例報告

Peritoneo-venous shunt カテーテル挿入が原因と思われる被嚢性腹膜硬化症で絞扼性イレウスを来した1例

洛和会音羽病院外科, 同 腎臓内科*

多田 正晴 中山 昇 坂田 晋吾
武田 亮二 山本 道宏 西崎 大輔
山口 哲哉 近藤 守寛* 高橋 裕

症例は59歳の男性で、肝硬変による腹水のコントロール目的で平成12年2月に peritoneo-venous shunt (以下, PVS) カテーテル挿入した。平成13年11月に急な腹痛で発症、絞扼性イレウスの診断で緊急手術を施行した。開腹すると腹腔内臓器ほぼ全体が白濁した硬い被膜に覆われていた。一部で硬い被膜が破れ小腸が露出し、その裂創に絞扼されて露出小腸は壊死していた。これらの所見から被嚢性腹膜硬化症 (encapsulating peritoneal sclerosis; 以下, EPS) とそれによる絞扼性イレウスと診断した。EPSは臨床的には腸閉塞症状を来し、腹腔内臓器が白濁肥厚した膜に覆われ、繭で包まれたように塊状になるとされる。EPSは continuous ambulatory peritoneal dialysis (以下, CAPD) の合併症として知られているが、本症例は、CAPD 以外でも腹腔内に異物であるカテーテルを留置する場合には EPS 発症の危険があることを示唆していると考えられる。

はじめに

被嚢性腹膜硬化症 (encapsulating peritoneal sclerosis; 以下, EPS と略記) は硬化性被嚢性腹膜炎 (sclerosing encapsulating peritonitis; 以下, SEP と略記) とも呼ばれ、びまん性に肥厚した腹膜の広範な癒着により、持続的、間欠的、あるいは反復性に腸閉塞症状を来す症候群であり¹⁾、腎不全に対する continuous ambulatory peritoneal dialysis (以下, CAPD と略記) 療法における最も重篤な合併症の一つである。今回、我々は CAPD 療法を施行しておらず、肝硬変による腹水コントロールのための peritoneo-venous shunt (以下, PVS と略記) カテーテル (Denver shunt system) 挿入後に発症した EPS とそれに起因する絞扼性イレウスの1例を経験したため報告する。

症 例

患者: 59歳, 男性

主訴: 急な腹痛

既往歴: 脳梗塞による右上下肢しびれ。β-blocker 内服の既往はなし。

現病歴: 平成8年ごろより慢性B型肝炎・肝硬変の診断で近医にて経過観察されていた。平成10年10月に肝細胞癌を指摘され肝後区域切除を施行された。腹水コントロールが徐々に困難になり、平成12年2月にPVSカテーテルを挿入したものの、シャント不全のため平成12年8月に一度抜去した。腎機能も増悪してきていたため、同月より人工透析を導入した。いったん、少し改善された腹水のコントロールが再び困難となり平成13年4月、PVSカテーテルを再挿入した。平成12年2月、平成13年4月のPVSカテーテル挿入時ともに、腹水の混濁はなく細菌培養検査陰性であることをカテーテル挿入前に確認した。平成12年秋頃から時折、腹部膨満、腹痛があったがすぐに軽快していた。左側腹部の腫瘤には平成13年夏ごろから気付いていた。平成13年9月末、小腸イレウスの診断で入院となった。イレウス管を挿入

<2006年7月26日受理>別刷請求先: 多田 正晴
〒606-8507 京都市左京区聖護院川原町54 京都大学医学研究科消化器外科

Fig. 1 Enterography via a long tube showed a delay of passage and a filling defect in the small intestine (arrow).



Fig. 2 Abdominal X-ray on admission showed a few dilated small intestine, but did not show remarkable ileus findings such as a niveau formation.



Fig. 3 Computed tomography scan showed a localized ascites and massive adhesion of the small intestine (arrow).

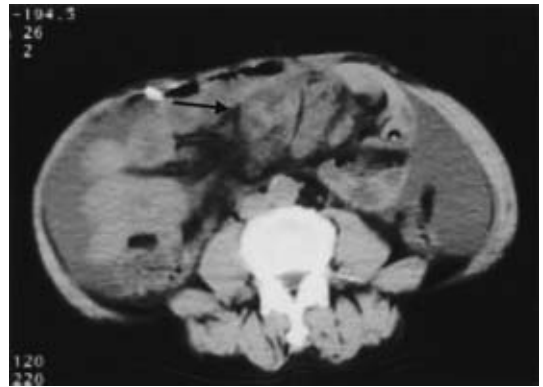


Fig. 4 During abdominal surgery, the whole of the intestine was found to be covered with a white opaque hard coat. The coat was partially torn, where the small intestine was exposed (arrow).

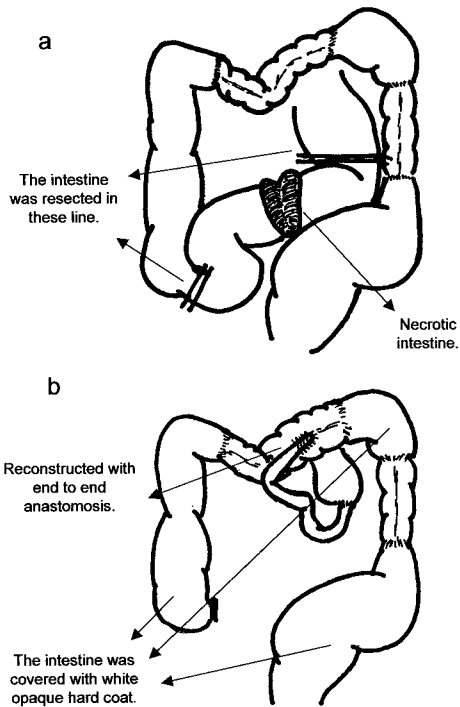


し保存的に治療した。イレウス管造影で造影剤の通過障害と小腸の拡張障害を認めたが (Fig. 1), 症状が軽快したため、いったん退院となった。しかし、再び腹痛が出現し同年11月末に再入院となった。

入院時現症：血圧 120/60mmHg, 脈拍 100 回/分, 体温 37.2℃, 腸蠕動音微弱, 腹部膨満を認めた。左側腹部に腫瘤触知, 同部位に軽度圧痛を認めるも反跳痛は認めなかった。

入院時検査所見：WBC：4,300/μl, RBC：

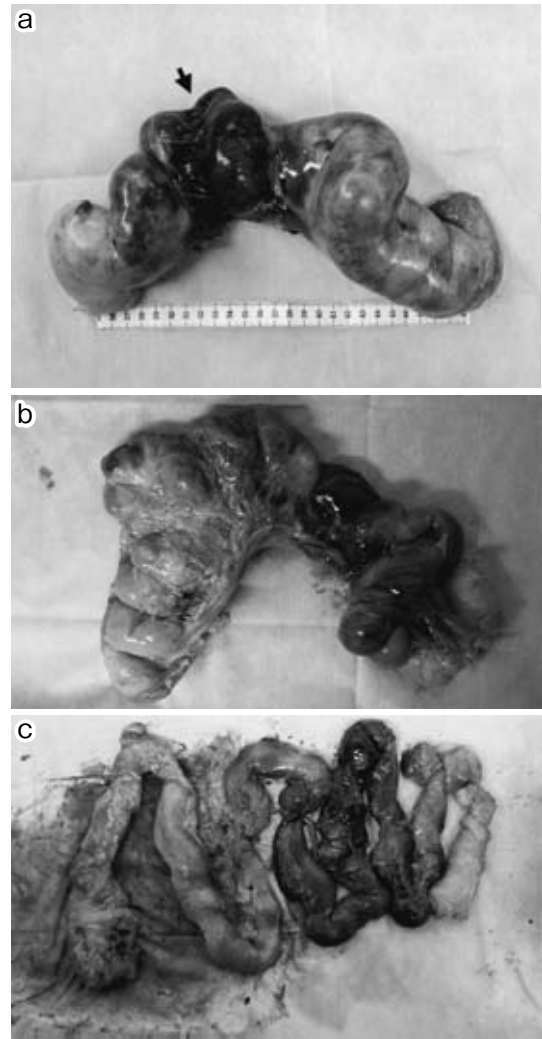
Fig. 5 Schema of intestinal resection (a) and reconstruction (b).



252 × 10⁴/μl, Ht : 27.5%, Plt : 60,000/μl, PT : 42%, T-Bil : 2.5mg/dl, GOT : 70IU/l, GPT : 45 IU/l, ZTT : 16.8K-U, ALP : 312 IU/l, γ-GPT : 40IU/l, ChE : 60IU/l, LDH : 656IU/l, CPK : 166IU/l, BUN : 35.5mg/dl, Cr : 5.5mg/dl, Na : 136mEq/l, K : 3.7mEq/l, Ca : 9.0mg/dl, P : 5.4mg/dl, TP : 7.5mg/dl, Alb : 3.5mg/dl, CRP : 2.05mg/dl, Child-Pugh : C(10点)と、肝、腎機能低下を示す所見であった。LDHの上昇を認めたが、CPKは正常範囲内であった。貧血は急な増悪はなく、腎性貧血と考えられた。血液ガス所見は、PH : 7.306, PO₂ : 113.4mmHg, PCO₂ : 32.5mmHg, HCO₃ : 17.2mmol/l, BE : -9.2mmol/lと代謝性アシドーシス所見を呈していた。

画像検査所見：入院時の腹部単純X線検査ではごく軽度拡張した小腸像を認めたが、ニボーはみられなかった(Fig. 2)。入院時のCTでは、一部に造影不良部分を伴う塊状になった小腸を認め、

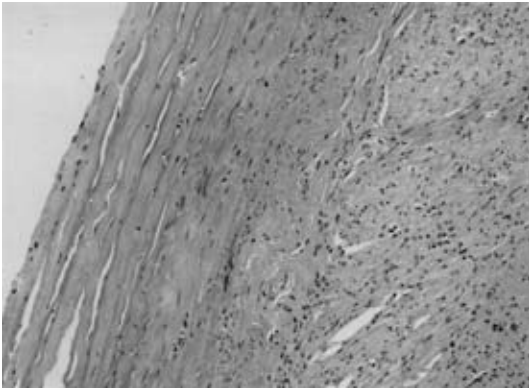
Fig. 6 A part of the small intestine that had been exposed due to damage of the coat was necrotized (a) (arrow). After incision of the white opaque hard coat, pleat-like adhesion was found in the intestine (b, c).



部分的に腹水を認めた (Fig. 3)。

入院後経過：入院後に腹痛が増悪した。入院時CTで見られた小腸が塊状に癒着している部分が触知され、圧痛があることからその塊状に癒着した部分が原因と考えられた。検査および画像所見より絞扼性イレウスと診断し、緊急手術を施行した。

Fig. 7 A surface of the serosa had been replaced with hyalinizing connective tissues and the serosa had thickened. Slight non-specific inflammation was observed in the thickened serosa (H.E.×100).



手術所見：開腹時、血性腹水あり。小腸全体は白濁した硬い被膜に覆われており、外観上その長さはおよそ1m程度であった。大腸は特に上行、S状結腸がしっかりした硬い膜で覆われていた。硬い被膜で覆われた小腸と思われる塊の中央付近で被膜が破れ腸管が脱出し、嵌頓壊死していた(Fig. 4)。壊死部の少し口側と、盲腸と思われる部分より5cmほど口側で硬い線維性の膜を切開し、中の小腸を露出して切離した後、両断端を閉鎖した(Fig. 5a)。覆われている膜があまり硬くない横行結腸中央部と小腸断端を側側吻合で再建した(Fig. 5b)。

摘出標本所見：摘出された小腸は白濁した硬い膜に覆われ、裂けた部分から脱出した小腸が壊死を起こしていた(Fig. 6a)。白濁した硬い膜を切開すると折り畳まれたように癒着した小腸を認めた(Fig. 6b, c)。その小腸には正常と思われる薄い漿膜を認めた。硬い被膜に覆われて塊状に癒着した小腸の一部に通過障害がおり、被膜の内圧が高くなったため破れて中の小腸が露出、その裂創に絞扼され露出した小腸が壊死したものと考えられた。これらの所見から、EPSとそれに起因する絞扼性イレウスと診断した。

術後経過：術後約10日目から経口摂取可能となったが、肝機能が徐々に悪化し、術後60日目に

死亡した。

病理組織学的検査所見：漿膜面は硝子化した結合組織におきかえられ、肥厚していた。肥厚した漿膜は、軽度の非特異的な炎症所見を認めるのみであり、悪性所見は認められなかった(Fig. 7)。

考 察

EPSは1980年に、SEPとしてGandhiら²⁾により報告されて以来、CAPDの合併症として多く報告されている。本邦においても調査がなされており、CAPD患者におけるEPS/SEPの発症頻度は1.7%(7,343例中124例)と報告され、発症した場合の2年生存率が51%とされており¹⁾、予後不良な疾患である。長期のCAPD施行³⁾⁴⁾、CAPD用の高張ぶどう糖透析液の使用⁵⁾、腹膜炎の罹患回数⁶⁾⁷⁾、 β -blocker⁸⁾の使用などのほかに、CAPDカテーテルによる異物反応⁹⁾などがEPS発症の危険因子と考えられている。また今回、我々が報告したように、CAPDは施行されていないが、肝硬変に対する腹水治療のためのPVSカテーテル挿入例でもEPS発症の報告は散見される^{10)~13)}。その原因としてカテーテルによる異物反応のほかに、shuntによる急激な腹水の代謝の変化が関与していると示唆する報告もある¹²⁾が、しかしながらその原因はいまだ明らかにされていない。

臨床的には腸閉塞症状を来し、CT、エコーなどの画像検査にて部分的な腹水の貯留、腹膜肥厚、腹膜の石灰化など¹⁾を認める。肉眼所見は腸管をはじめとする腹腔内臓器が白濁肥厚した膜に覆われ、繭で包まれたように塊状になるとされ、本疾患を特徴づけるものといえる。自験例もこれらの症状、検査所見を呈しており典型的なEPSの例といえる。病理学的には、中皮細胞の剥離、消失、中皮下結合組織の肥厚、腹膜細小動脈の狭窄や閉塞などが特徴とされる¹⁾。

PVSカテーテルを挿入し腹水治療を行った肝硬変患者の69剖検例のうち26例(38%)に腹膜硬化像を認めたとの報告¹²⁾もあるが、腸閉塞症状などの臨床症状を呈し、さらに絞扼、穿孔などのために手術が施行され、生前診断される例はまれである(PubMedで「encapsulating peritoneal sclerosis」をキーワードに検索すると、1984年か

ら2006年までの間に115件、「encapsulating peritoneal sclerosis and peritono-venous shunt」をキーワードに検索すると、同期間で1件のみ。医中誌で「被嚢性腹膜硬化症」をキーワードに検索すると1983年から2006年までに505件、そのうち抄録ありの症例報告は61件でPVSカテーテルが原因とされるEPSの記載なし。保存的治療としては、絶食、TPNを施行し腸管の安静をはかるほかに、ステロイドや免疫抑制剤の投与が効果的とされる¹⁾。外科的治療は、絞扼、穿孔などは絶対適応となりうるが、高度癒着に対する腸管剥離術は慎重な術前検討が必要といわれている^{14)~17)}。自験例は術前の検査から腸壊死が疑われ、実際に小腸壊死が認められたことから開腹手術はやむをえなかったと考えられる。

CAPD目的でカテーテルを挿入している場合以外にも、肝硬変患者の腹水コントロール目的でPVSカテーテル挿入をした場合など、腹腔内にカテーテルを留置またはその既往がある場合はEPSが生じ、時には開腹手術が必要となる可能性があることを念頭においておく必要があると考えられた。

文 献

- 1) 野本保夫, 久保 仁, 酒井信治ほか: 硬化性被嚢性腹膜炎 (sclerosing encapsulating peritonitis, SEP) 診断・治療指針 (案) —1997年における改訂一. 透析会誌 **31**: 303—311, 1998
- 2) Gandhi VC, Humayun HM, Ing TS et al: Sclerotic thickening of the peritoneal membrane in maintenance peritoneal dialysis patients. Arch Intern Med **140**: 1201—1203, 1980
- 3) Kawanishi H, Kawaguchi Y, Fukui H et al: Encapsulating peritoneal sclerosis in japan: a prospective, controlled, multicenter study. Am J Kidney Dis **44**: 729—737, 2004
- 4) Wakabayashi Y, Kawaguchi Y, Shigematsu T et al: Extensive peritoneal calcification as a complication of long-term CAPD. Perit Dial Int **15**: 369—371, 1995
- 5) Dobbie JW: New concepts in molecular biology and ultrastructural pathology of peritoneum: their significance for peritoneal dialysis. Am J

- Kidney Dis **15**: 97—109, 1990
- 6) Slingeneyer A: Preliminary report on a cooperative international study on sclerosing peritonitis. Contrib Nephrol **57**: 239—247, 1987
- 7) Nomoto Y, Kawaguchi Y, Kubo H et al: Sclerosing encapsulating peritonitis in patients undergoing continuous ambulatory peritoneal dialysis: a report on the Japanese sclerosing encapsulating peritonitis study group. Am J Kidney Dis **28**: 420—427, 1996
- 8) Yamamoto S, Sato Y, Takeishi T et al: Sclerosing encapsulating peritonitis in two patients with liver cirrhosis. J Gastroenterol **39**: 172—175, 2004
- 9) 高良博明, 堀 晃, 下地國浩ほか: 硬化性被嚢性腹膜炎 (sclerosing encapsulating peritonitis, SEP) の1例. 沖縄中部病医誌 **25**: 12—15, 1999
- 10) Greenlee H, Stanley M, Reinhart G et al: Small bowel obstruction from compression and kinking of intestine by thickened peritoneum in cirrhotics with ascites treated with Le Vein shunt. Gastroenterology **76**: 1282—1285, 1979
- 11) Sheth NK, Gleysteen JJ: Infiltrative fibrosis with acute hemorrhagic intestinal infarction: association with a peritoneovenous shunt. Surgery **100**: 99—104, 1986
- 12) Stanley MM, Reyes CV, Greenlee HB et al: Peritoneal fibrosis in cirrhotics treated with peritoneovenous shunting for ascites. Dig Dis Sci **41**: 571—577, 1996
- 13) Lin CH, Yu JC, Chen TW et al: Sclerosing encapsulating peritonitis in a liver transplant patient: a case report. World J Gastroenterol **11**: 5412—5413, 2005
- 14) 佐藤純彦, 寺岡 慧, 前田桂子ほか: 硬化性被嚢性腹膜炎5例の検討. 透析会誌 **28**: 187—195, 1995
- 15) Kuttur DS, Korpe SW, Raytch RE et al: Surgical aspects of sclerosing encapsulating peritonitis. Arch Surg **125**: 1626—1628, 1990
- 16) Pusateri R, Ross R, Marshall R et al: Sclerosing encapsulating peritonitis: report of a case with small bowel obstruction managed by long-term home parenteral hyperalimentation, and a review of the literature. Am J Kidney Dis **8**: 56—60, 1986
- 17) 山田成寿, 加納宣康: CAPD患者の急性腹症の検討. 日腹部救急医学会誌 **20**: 415—420, 2000

A Case of Strangulation Ileus caused by a Encapsulating Peritoneal Sclerosis due to a Peritoneo-venous Shunt

Masaharu Tada, Noboru Nakayama, Shingo Sakata,
Ryoji Takeda, Michihiro Yamamoto, Daisuke Nishizaki,
Tetsuya Yamaguchi, Morihiro Kondo* and Hiroshi Takahashi
Department of Surgery and Department of Nephrology*, Rakuwakai Otowa Hospital

We present a case of a 59-year-old man with encapsulating peritoneal sclerosis (EPS) probably induced by a peritoneo-venous shunt (PVS). In February 2000, a PVS was inserted to control ascites caused by liver cirrhosis. In November 2001, the patient developed acute abdominal pain, was diagnosed with strangulation ileus, and underwent emergency abdominal surgery, during which, almost all abdominal organs were found to be covered with an opaque white hard coat. A part of the coated lesion was torn, and the intestine was exposed and strangulated by laceration with necrosis. Based on these findings, the patient was diagnosed with EPS associated with strangulation ileus. Clinical EPS symptoms are ileus-like and abdominal organs are covered with an opaque white thick coat and cocooned in lumps. EPS is known to be a complication of continuous ambulatory peritoneal dialysis (CAPD), and this case suggests that an indwelling catheter other than a CAPD catheter, i.e., a foreign body in the abdominal cavity, may also be a risk factor for EPS.

Key words : encapsulating peritoneal sclerosis, peritoneo-venous shunt, strangulation ileus

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 40 : 325—330, 2007]

Reprint requests : Masaharu Tada Department of Surgery, Graduate School of Medicine, Kyoto University
54 Kawara-cho, Syogoin, Sakyo-ku, Kyoto, 606-8507 JAPAN

Accepted : July 26, 2006