

症例報告

被嚢性腹膜硬化症術後再発に対して再手術を施行した1例

東京慈恵会医科大学外科, 古川橋病院外科*, 東北大学大学院医学系研究科腎不全対策研究講座**

渡部 通章 向井 英晴* 高尾 良彦
中山 昌明** 穴澤 貞夫 矢永 勝彦

症例は55歳の男性で、慢性腎不全に対して1993年9月に腹膜透析が導入された。腹膜炎のため、2002年5月に血液透析に移行した。保存的治療に抵抗性の被嚢性腹膜硬化症(以下、EPS)と診断され同年11月に初回の手術(被嚢剥離術)が施行された。その後、EPS再発によるイレウスとなり保存的治療では改善せず、2004年4月に再手術(被嚢剥離術)が施行された。初回と同様に小腸全体が硬い厚い膜で被われ癒着していた。さらに、初回術後の癒着もあったが被嚢をすべて剥離した。術中2か所で小腸を損傷したためにその口側で人工肛門を造設した。手術時間6時間30分、出血量728g。術後11日目で全粥摂取可能となり内科に転科転床した。EPSに対する手術治療は成績不良かつ致命的合併症の発生率が高いとされていた。術前の全身状態、感染を確実にコントロールし、慎重な手技を徹底することで、EPSに対する再手術は可能と考える。

はじめに

被嚢性腹膜硬化症(encapsulating peritoneal sclerosis; 以下、EPS)は持続腹膜透析(continuous ambulatory peritoneal dialysis; 以下、CAPD)患者の最終的な合併症である。EPSによるイレウス症状は内科的治療の限界を超えたとき、外科的な治療のみが解決方法となるが、そのmortality rateは60%ともいわれており¹⁾、その適応は慎重にならざるをえない。当院においては、慎重な適応の判断とinformed consentのもと、積極的に手術治療に取り組んできた。今回、我々はEPS手術後のイレウス再発症例に対して再度手術療法を施行し、良好な結果を得たので報告する。

症 例

患者: 55歳, 男性

主訴: 腹痛, 嘔吐

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1993年9月, 糸球体腎炎に対して血液

透析(以下、HD)が開始された。1994年12月CAPDが導入された。2002年5月にはCAPD腹膜炎のためイレウス症状が出現し、テンコフカテーテルが抜去され、HDが再導入された。その後もイレウス症状は改善せず、EPSと診断された。ステロイドパルス療法を含む保存的治療が継続されたが最終的には改善しなかったため、同年11月に腹部全体の被嚢剥離術が施行された。手術後にイレウス症状は改善し、経口摂取可能となった。術後はステロイド投与と腹腔洗浄は施行されていなかった。2003年8月にイレウスが発症し、EPS再発と診断された。ステロイドを含む保存的治療で軽快し、その後はステロイド(プレドニゾロン5mg)の内服を継続していた。2004年1月にイレウスが再発し、当院内科に入院となった。

入院時現症: 身長172cm, 体重54.8kg。血圧142/70mmHg, 脈拍60回/分, 整。体温36.6℃。胸部に異常所見を認めなかった。腹部は膨満, 圧痛なし, 反跳痛なし, 腸雑音低下。正中に手術創瘢痕を認めた。

入院時検査所見: WBC 3,900/mm³, Hb 9.6g/dl, PT > 100%, APTT 34.4sec, Fbg 316mg/dl, TP

<2007年1月31日受理>別刷請求先: 渡部 通章
〒105-8461 港区西新橋3-25-8 東京慈恵会医科大学外科学教室

Fig. 1 Plane abdominal CT before operation. Thickened peritoneum with mild calcification, dilated small bowel and severe intestinal adhesion were recognized.



5.5g/dl, Alb 3.7g/dl, ChE 2,424mU/ml, CRP 0.28 mg/dl.

腹部CT：腹膜の肥厚および軽度石灰化，腸管相互の高度の癒着および被包化された腹水を認めEPSの所見であった²⁾。小腸は拡張し液面を形成しているが消化管狭窄部は同定できなかった(Fig. 1)。

手術までの経過：中心静脈栄養およびステロイド投与による保存的治療が施行されたが改善せず手術適応と判断された。手術は全身状態が安定した後，CRPが低値である状態で2004年4月に施行された。

手術所見：全身麻酔下に前回の皮膚切開通り正中開腹した。腹部上3分の1は強固な癒着を認め，丹念な剥離を要した。この癒着は前回開腹術後の癒着と考えられた。腹部下3分の2はEPSの状態，腹壁の直下は厚い被膜で覆われた巨大な空間になっており，黄色腹水が認められた。その空間の背側は腸管全体が連続性に厚く白い被膜で覆われた状態であった。腸管は全体が毛布で覆われたようになっており周囲と強く癒着して，いわゆる“frozen adhesion”または“cocoon”の状態であった。肉眼的には明らかなEPSと判断された。腸の蠕動はまったく認められなかった(Fig. 2a)。これら被膜を鈍的，鋭的に丹念に剥離していった。表面の被膜を剥離し，腸管自体の皮膜を剥離した。

一部は硬く石灰化している部位も認めたため，これらを鋭的に切離した。漿膜や筋層の損傷は，漿膜筋層縫合をかけて修復した。被膜による被覆がもっとも顕著であったのは回盲部から骨盤内の回腸で剥離に難渋した。丹念な剥離にもかかわらず，回腸2か所を全層で損傷した(穿孔)。穿孔部は回腸末端から50cmの部位で両者の距離は5cmほどであった。穿孔部は両者とも腸管軸方向に2cm程度の大きさであった。EPSの手術においては腸管切除吻合症例の手術成績は悪く³⁾，禁忌とも言われている⁴⁾。術中腸管損傷が生じた場合，同部位を切除し両端を人工肛門とする方法と，損傷部位を縫合閉鎖しその口側で人工肛門を造設する方法が考えられる。前者は確実な方法であるが，将来人工肛門の閉鎖には大きな開腹創とかなりの癒着剥離が必要となる。後者は縫合閉鎖部における縫合不全の危険があるが，同部位には腸液の流入はなく単純縫合閉鎖よりはリスクは小さい。また，双孔式人工肛門となり将来の人工肛門の閉鎖は比較的容易である。今回は損傷部の腸管の状態は良好であったため腸管部分切除は施行せず2層で縫合閉鎖し，穿孔部のすぐ口側に双孔式回腸人工肛門を造設した。小腸のほとんどと大腸の一部をきれいに剥離した(Fig. 2b)。剥離後は腸管の蠕動を認めた。人工肛門はあらかじめマーキングしておいた2か所のうち左腹部のマークに造設した。手術時間6時間30分，出血量728gであった。

病理組織学的検査所見：剥離された被囊の病理組織学的検査所見は膠原線維性結合組織であり，一部変性，myxoid changeを認めた。これらは固有腹膜から分泌され堆積(集積)または沈着したものと考えられる。被囊の内側には肥厚した固有腹膜とさらにその内側に毛細血管の閉塞所見を認めた。これは初回の被囊と比較してもほぼ同様の所見であった(Fig. 3)。

術後経過：術後4日目から飲水を開始し，5日目に流動食開始。11日目には全粥摂取に問題なく，12日目に腎臓内科へ転科転床となった。その間，38℃を越す発熱はなく，術後10日目にはCRPは1.1mg/dlに下降し，WBCは5,900/mm³であった。術後再々発予防として，プレドニゾロン5mg

Fig. 2 A retractor was placed after laparotomy. Whitish thick membrane covered lower two third of the operative view, which was typical findings of EPS (a). In the other upper one third of the operative area, regular post operative adhesion was observed. All of the membrane was removed and all small intestine was freed (b).

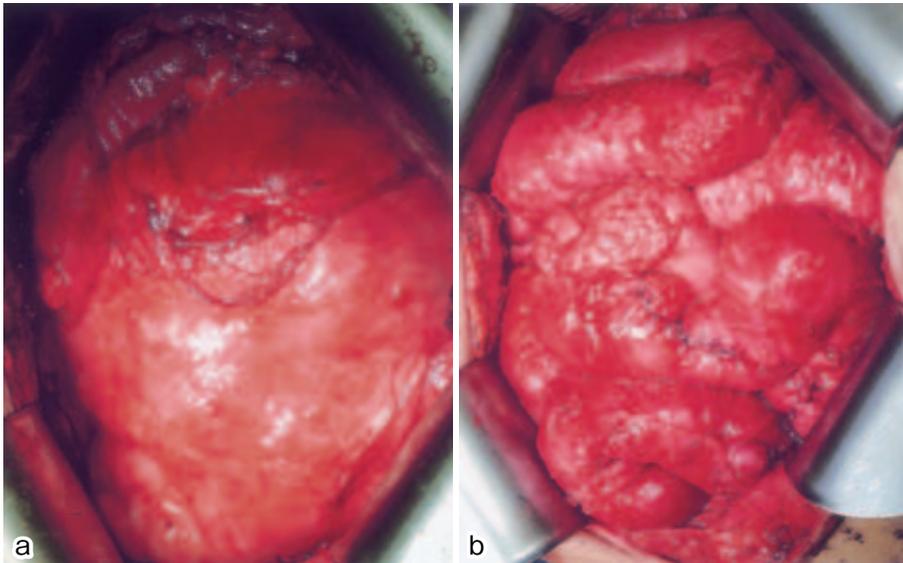
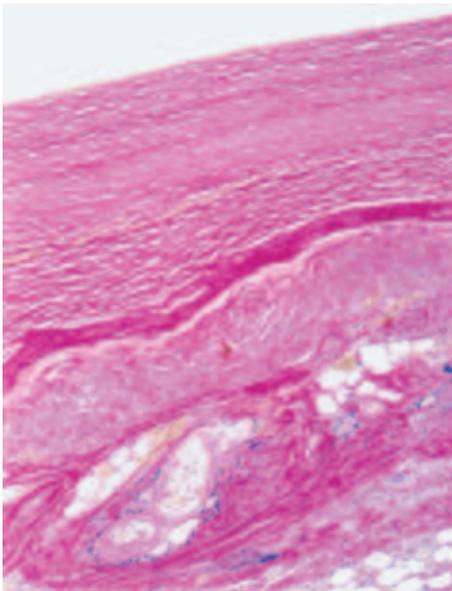


Fig. 3 Histopathological findings (Elastica van Gieson stain : $\times 40$)

Proper peritoneum layer was thickened and microcapillaries were almost obliterated. The proper peritoneum secretes fibrin and is composed of collagen accumulation layer, which secretion layer covers the accumulation layer. These two layers are substances of EPS.



を隔日で投与したが、逆行性感染のリスクを考え腹腔洗浄は施行しなかった。術後58日目に軽快退院した。人工肛門は2年後に閉鎖した。人工肛門周囲の皮切で開腹したため腹腔全体は観察できなかったが、人工肛門周囲の癒着は簡単に剥離でき、EPSの所見は認めなかった。

考 察

EPSはかつて硬化性被嚢性腹膜炎(SEP)とよばれ、1980年にGandhiら⁵⁾が報告して以来、多くの報告がなされてきた。その病態はびまん性に肥厚した腹膜の広範な癒着により、持続的、間歇的あるいは反復性にイレウス症状を呈するものである⁶⁾。イレウスは機械的な閉塞機転というより、多くは腸管が硬く厚い被膜で固定されて蠕動ができなくなることによると考えられている。

その発症原因には諸説ある。突発性と続発性があり、続発性ではCAPD以外にも原因は報告されており、肝硬変に合併した症例も報告されている⁷⁾。CAPDの場合はCAPD期間中の難治性かつ反復性の腹膜炎、細菌性腹膜炎¹⁾、長期透析による腹膜の劣化などに起因するといわれているが、腹膜カテーテル抜去後に起こることが多く、抜去後

の腹膜再生過程に関係するとも言われている⁸⁾。とくに、CAPD 期間が長くなるほど EPS の発生頻度は高くなる⁹⁾¹⁰⁾。

IVH, ステロイドなど内科的治療でも改善しない場合は外科的治療の適応となる。Slingeneyer ら¹⁾の報告では外科的治療の致命率は 60% であり、さらに Kittur ら⁸⁾、小俣ら¹¹⁾もその手術治療の困難さを報告しており、かつては禁忌とされていた。Kawaguchi ら¹²⁾も一般的には手術成績は良くないとしており、手術適応には慎重にならざるをえない。しかしその後、野本ら⁶⁾や Kawanishi ら¹³⁾により手術による良好な成績が報告された。また、手術に際しては腸管の切除再吻合は禁忌とされている¹³⁾¹⁴⁾。経口摂取の増加に伴うイレウス発症や再燃など、中心静脈栄養とステロイドによる内科的治療で改善しない症例は手術適応となる¹⁰⁾¹⁵⁾。炎症所見の消失、CRP が低下した時点で開腹、被嚢剥離術を行う¹⁵⁾。さらに、腹膜石灰化が局限されているものは手術適応となるが、全体に石灰化の強いものは慎重に適応を選ぶべきとされている。

術中に腸管を全層で損傷した場合(穿孔)は損傷部腸管切除もしくは縫合閉鎖を施行する。単純に切除吻合した場合 11 例中 9 例で手術関連死亡報告がされており¹⁶⁾、腸管穿孔例では人工肛門は必須となる。人工肛門の閉鎖時期もしくは適応は経口摂取による栄養状態の改善や年齢、社会的な背景などにより症例ごとに検討されるべきと考える。

EPS 術後の再発は、Kawanishi によれば 56 手術例中 10 例 (18%) に再発し、再手術が施行された。我々の施設では待機手術例 9 例中今回の症例が初めての再発であり (再発率 11%)、10 例目の被嚢剥離術であった。EPS 術後の再発機序に関しては不明である。今回の症例では初回術後腹膜炎はなく、CAPD も施行していないため初回の発生機序とは異なると考えられる。しかし、初回の切除腹膜(膠原線維性結合組織)と今回の切除腹膜の病理組織検査所見は基本的には同様の所見であった。EPS の原因は、炎症による刺激と腹膜の劣化によるもので¹⁰⁾、病態としては腹膜自体が肥厚しフィブリン分泌過剰になったために腹膜表面

のフィブリン集積層が形成されものと思われる。被嚢剥離術は集積層と一部の腹膜を切除するが、腹膜の劣化に関してはまったく解決されないと考えられる¹⁰⁾。術後に手術自体をふくめ機械的な炎症などの刺激で、初回と同じ環境となり EPS が再発した可能性は十分に考えられる。実際には症状として再発していなくても被膜が再度形成されていることもあり再発、非再発の定義は難しい¹⁷⁾。

EPS の術後再発予防法としては、術後はカテーテルを挿入ししばらく腹腔洗浄をする¹⁸⁾、ステロイドはゆっくりと漸減するなどが考えられる。ステロイド投与の主目的が炎症を抑えることであるのならば、被嚢剥離による機械的な炎症を抑える意味はあるかもしれない。本症例では初回術後には再発予防としステロイドは使用していなかったことも再発の一因と考えられたため、2 回目手術後はステロイドを低容量で継続した。しかし、術後再発、再々発予防にはステロイドは無効との報告¹⁷⁾もあり、はっきりしていない。現在、我々は術後には特別な再発予防策は講じていない。今後の検討が必要であろう。

今回の症例のように EPS が再発した場合、症状が軽度であれば初回と同様に保存的治療をまず試みる。しかし、再発に対して複数回手術を施行した報告もあり¹⁰⁾、また、初回時の手術に至った経緯と被嚢の再生¹⁷⁾を考えれば、再発時も基本的には手術で対応するべきと考える。

なお、文献検索に関しては、日本語文献は医学中央雑誌から「被嚢性腹膜硬化症」および「硬化性被嚢性腹膜炎」のキーワードで 1996 年から 2006 年を検索し、英語論文は PubMed を用いて「peritoneal sclerosis」と「peritoneal dialysis」のかけあわせで検索した。

文 献

- 1) Slingeneyer A : Preliminary report on a cooperative international study on sclerosing encapsulating peritonitis. *Contrib Nephrol* 57 : 239-247, 1987
- 2) Krestin GP, Kacl G, Hauser M et al : Imaging diagnosis of sclerosing peritonitis and relation of radiologic signs to the extent of the disease. *Abdom Imaging* 20 : 414-420, 1995
- 3) 金 昌雄, 山本忠司, 出雲谷剛ほか : 被嚢性腹膜

- 硬化症の外科治療. 腎と透析 52 (別冊) : 17—22, 2002
- 4) 川西秀樹 : 被嚢性腹膜硬化症の治療戦略. 腎と透析 52 (別冊) : 8—12, 2002
 - 5) 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
 - 6) 野本保夫, 川口良人, 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年における改定一. 透析会誌 31 : 303—311, 1998
 - 7) 村田祐二郎, 坂東道哉, 服部正一ほか : 肝硬変に合併した硬化性被嚢性腹膜炎の1例. 日消外会誌 38 : 1726—1731, 2005
 - 8) Kittur DS, Korpe SW, Raytch RE et al : Surgical aspects of sclerosing encapsulating peritonitis. Arch Surg 125 : 1626—1628, 1990
 - 9) Yamamoto H, Nakayama M, Yamamoto R et al : Fifteen cases of encapsulating peritoneal sclerosis related to peritoneal dialysis : a single-center experience in Japan. Adv Perit Dial 18 : 135—138, 2002
 - 10) Kawanishi H : Encapsulating peritoneal sclerosis. Nephrology 10 : 249—255, 2005
 - 11) 小俣正子, 佐中 孜, 篠部道隆ほか : 硬化性腹膜炎—診断・治療へのアプローチ. 腎と透析 40 : 871—874, 1996
 - 12) Kawaguchi Y, Kawanishi H, Mujais S et al : Encapsulating peritoneal sclerosis : definition, etiology, diagnosis, and treatment. Perit Dial Int 20 (suppl 4) : S43—55, 2000
 - 13) Kawanishi H, Harada Y, Noriyuki T et al : Treatment options for encapsulating peritoneal sclerosis based on progressive stage. Adv Perit Dial 17 : 200—204, 2001
 - 14) 川西秀樹 : 硬化性被嚢性腹膜炎に対する手術療法. 透析ケア 6 : 35—39, 2000
 - 15) 川西秀樹 : 硬化性被嚢性腹膜炎の予防法ならびに治療法. 透析ケア 6 : 22—27, 2000
 - 16) 川西秀樹, 川口良人 : 硬化性被嚢性腹膜炎 (SEP) の全国調査—1998年11月の結果一. 腎と透析 49 : 225—228, 2000
 - 17) 渡辺浩志, 川西秀樹, 川口康夫ほか : 再発を繰り返し治療に難渋した被嚢性腹膜硬化症手術症例. 腎と透析 59 (別冊) : 85—87, 2005
 - 18) 有蘭健二, 松岡 潔, 宮本哲明ほか : 外科手術が奏功した硬化性被嚢性腹膜炎の3症例. 透析会誌 32 : 1259—1264, 1999

Surgical Approach for Recurrent Encapsulating Peritoneal Sclerosis A Case Report

Michiaki Watanabe, Hideharu Mukai*, Yoshihiko Takao,
Masaaki Nakayama**, Sadao Anazawa and Katsuhiko Yanaga
Department of Surgery, Jikei University School of Medicine
Department of Surgery, Furukawabashi Hospital*

Tohoku University Graduate School of Medicine, Research Division of Dialysis and Chronic Kidney Disease**

A 55-year-old male who had been treated by continuous ambulatory peritoneal dialysis (CAPD) for chronic renal failure for the past 8 years developed intestinal obstruction. The CAPD was discontinued, and hemodialysis was instituted. Encapsulating peritoneal sclerosis (EPS) was diagnosed in 2002 and treated surgically by total intestinal enterolysis. Small bowel obstruction recurred 9 months later, and recurrent EPS was diagnosed. Conservative treatment was effective at once, it was ineffective at second time and reoperation was indicated. Intraoperatively, a thick, firm membrane covered the entire intestine the same as observed during the first operation, and postoperative adhesions were also noted. All of the membranes were peeled off, and the adhesions were detached from the entire intestine. Peristalsis was confirmed after the enterolysis. An ileostomy was created for protection against ileal injury. The patient regained full oral intake. The surgical treatment for postoperative recurrence of EPS seems to be safe and effective.

Key words : encapsulating peritoneal sclerosis, continuous ambulatory peritoneal dialysis, sclerosing encapsulating peritonitis

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 40 : 746—751, 2007]

Reprint requests : Michiaki Watanabe Department of Surgery, Jikei University, School of Medicine
3-25-8 Nishi-shinbashi, Minato-ku, 105-8461 JAPAN

Accepted : January 31, 2007