

症例報告

腸管囊腫様気腫症による腸重積の1切除例

厚生連加茂病院外科

渡邊 克隆 神谷 順一 塩見 正哉
東島由一郎 神谷 論

腸管囊腫様気腫症は腸閉塞、腸管壊死や呼吸器疾患などに合併するまれな疾患である。腸管囊腫様気腫症が原因で腸重積を来した症例は国内、海外の報告を合わせて16例と非常にまれである。症例は22歳の男性で、主訴は腹痛で受診した。腹部単純CTで腸管壁に沿って多発する気腫様変化と multiple concentric ring sign を伴う腸重積を認めた。大腸内視鏡検査では陥入した腸管の先端部にぶどうの房状に気腫を認めた。以上の所見より、腸管囊腫様気腫症による腸重積と診断し、内視鏡で整復した。整復後から31日目に腸重積を再発した。繰り返し発症するため外科的治療を選択し、右結腸切除を施行した。摘出標本は全体に浮腫を来しており、上行結腸を中心にぶどうの房状に気腫を認めた。気腫の原因は不明であった。術後経過は良好で第8病日に退院した。

はじめに

腸管気腫症は腸閉塞、腸管壊死や呼吸器疾患などに合併するまれな病態である。我々は腸管気腫症が原因で腸重積を来した非常にまれな症例を経験したので報告する。

症 例

症例：22歳、男性

主訴：左上腹部痛

既往歴：特になし、現職業はコンビニエンスストアでアルバイト。

現病歴：突然発症した左上腹部痛の主訴により救急外来受診した。盲腸結腸型の腸重積の診断により大腸内視鏡で整復した。整復後の経過は良好で第6病日に退院となった。退院後第25病日に腸重積を再発したため、緊急入院となった。

入院時現症：身長175cm、体重63kg。左上腹部に腫瘤を触知し圧痛を認めるが、腹膜刺激症状、筋性防御は認めなかった。血圧は正常であったが(122/68mmHg)、脈拍は軽度増加していた(102回/分)。

入院時検査所見：白血球の軽度増加(10,900/mm³)と軽度の濃縮血を認め(赤血球5.28×10⁶/mm³、ヘモグロビン16.0g/dl)、脱水が疑われた。

初診時の腹部単純CT所見：腸管壁に沿って多発する気腫様変化と multiple concentric ring sign を伴う腸重積を認めた (Fig. 1)。

大腸内視鏡検査：横行結腸内に重積腸管の先端部を認め、先端にはブドウの房状に囊腫様隆起を認めた (Fig. 2)。

大腸内視鏡による整復：内視鏡下に空気を送ることによって、ブドウの房状のガス像が右下腹部に移動した。小腸に空気が流入する所見を観察できたため、回盲弁を確認できなかったが整復できたと判断した (Fig. 3)。経過観察のために大腸内視鏡検査を勧めたが、患者は医療費を理由に拒否している。

再発時の腹部造影CT所見(退院後第25日目)：前回と同じく腸管壁に沿って多発する気腫様変化と multiple concentric ring sign を伴う腸重積を認めた。腸管浮腫が増強していると考えられた。腸管内のガス像の大きさは変化を認めなかった (Fig. 4)。大腸内視鏡検査を拒否したため、高圧浣

Fig. 1 Plain abdominal CT scan showed multiple air-filled cysts along the intestinal wall and an intussusception with multiple concentric ring sign.

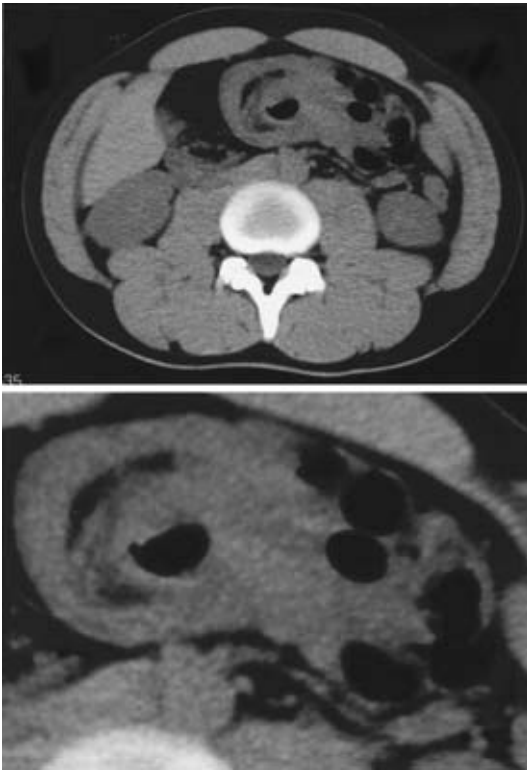
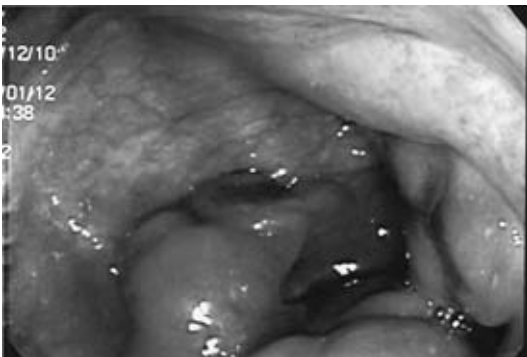


Fig. 2 Colonoscopy showed that the leading part of the intestinal tract had a pneumatosis in the shape of a cluster of a grape.



腸による整復を試みたが、整復できず、緊急手術を施行した。

手術所見：右経腹直筋切開で手術を開始した。

Fig. 3 We were able to observe the evidence that air flowed into the small intestine (arrow).



上行結腸は固定されておらず、移動盲腸であった。回盲部が横行結腸に陥入しており、用手的に整復した。気腫が上行結腸に限局していることから、右結腸切除を施行した。摘出腸管は肥厚し、ブドウの房状に気腫を認めた (Fig. 5)。

病理組織学的検査所見：粘膜下層に気腫が集簇してみられた (Fig. 6)。

術後経過は良好で手術後第8病日に退院した。手術後6か月経過した現在腸管気腫の再発は認めていない。

考 察

腸管囊腫様気腫症は腸管壁の粘膜下または漿膜下に多数のガスを認めるまれな疾患である。Galandiukら¹⁾の論文によれば、1730年にDu-Vernoiによる剖検例が最初に報告され、1825年

Fig. 4 Enhanced abdominal CT scan showed multiple air-filled cysts along the intestinal wall and an intussusception with multiple concentric ring sign. The wall thickness was more clear (arrow), so we thought that the intestinal tract oedema increased.



Fig. 5 The resected specimen was oedema in the whole and showed pneumatosis in the shape of a cluster of a grape mainly on the ascending colon.

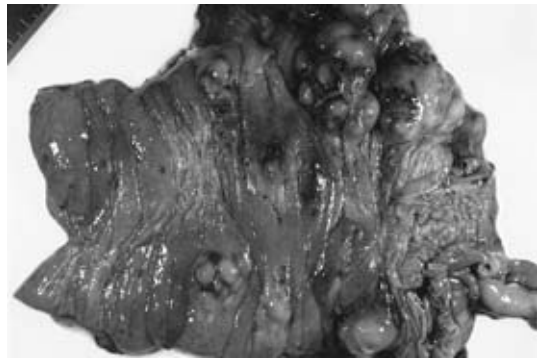
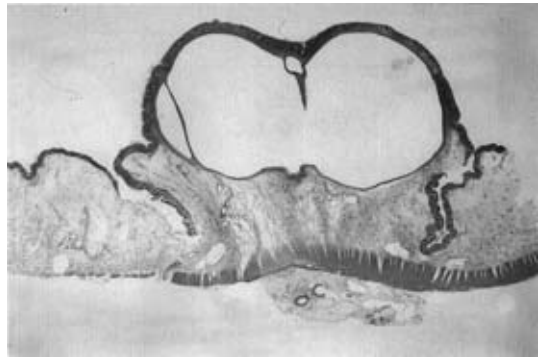


Fig. 6 Histopathological findings : Some pneumatosis were located in the parts of the submucosa.



に Meyer により命名された。本邦では 1901 年に三輪が第 1 例を報告したと記載している。比較的古まれな疾患とされていたが、近年 CT などの画像診断の進歩に伴って報告が増加傾向にある。

男女比で 3.5 : 1 と男性に多く、基礎疾患の有無により原発性と続発性に大別され、おのおの約 15%、約 85% と言われている²⁾。基礎病態としては臓器移植後、膠原病、炎症性腸疾患、悪性腫瘍、白血病、ステロイドの長期使用や化学療法施行中などが報告されている^{3,4)}。機序として、機械説、肺原説、化学説、細菌説などの説が提唱されている⁵⁾。

機械説は腸管内圧の上昇から腸管内ガスが粘膜

の潰瘍や微細な損傷部位より腸管壁内に侵入し発生するとする。基礎疾患として腸閉塞、幽門狭窄、虫垂炎、潰瘍性大腸炎などがある。肺原説は喘息や慢性肺疾患などで胸腔内圧の上昇により肺胞壁に無痛性破裂を生じ、ガスが縦隔内に入り、後腹膜を介して腸管壁に達し気腫を形成するとされている⁵⁾。また、化学説はトリクロロエチレン、ステロイド、 α グルコシダーゼ阻害剤の関与が報告されている。細菌説は腸管内に侵入したガス産生細菌が発症の要因とする考えかたである⁵⁾。一つの説のみで腸管囊腫様気腫症の発症を説明するのは困難であり、最近では機械説、細菌説の両方で発症するとの報告⁶⁾や、細菌の発酵による腸管内水素分圧の上昇が腸管壁内への水素ガスの進入を引き起

Table 1 Cases of intussusception associated with pneumatosis cystoides intestinalis

Author	Year	Age/Sex	Coexistence disorder	Location	Treatment
Komuro ⁷⁾	1983	21/M	—	ascending colon	operation (resection)
Wang ¹⁵⁾	1988	55/M	—	transverse colon	operation (resection)
Miyasaka ⁸⁾	1988	15/F	—	cecum	operation
Bartsch ¹⁶⁾	1993	52/M	—	ascending colon	operation (resection)
Shiroiwa ⁹⁾	1995	17/M	Cerebral palsy	cecum, ascending colon	operation (resection)
Ahrar ¹⁷⁾	1996	29/M	—	cecum, ascending colon	operation (resection)
Navarro ¹⁸⁾	1997	13/M	—	cecum ~ transverse colon	operation (resection)
Imamura ¹⁰⁾	1998	10/M	Cerebral palsy	cecum ~ descending colon	operation (resection)
Yauchiara ¹¹⁾	1999	12/F	SLE	ascending colon	barium enema
Oyama ¹²⁾	2000	12/F	Asthma	cecum	high enema
Dubinsky ¹⁹⁾	2000	1/M	Crohn's Disease	descending colon	operation
Morrison ²⁰⁾	2001	5/M	Peters' anomaly	transverse colon	operation (resection)
Stern ²¹⁾	2001	32/M	—	ascending colon	barium enema
Sugita ²²⁾	2004	5/F	CML	ascending colon	barium enema
Kunimatsu ¹³⁾	2005	16/M	—	cecum, ascending colon	operation (resection)
Tamaki ¹⁴⁾	2005	21/M	Asthma	ascending colon	operation (resection)
Our case		22/M	—	ascending colon	operation (resection)

こし、圧勾配に従って嚢胞を形成するガス平衡説も報告されている⁶⁾。自験例は基礎疾患を認めず、原発性が有力と考えられている。

腸管囊腫様気腫症は臨床症状として特異的なものではなく、無症状のことが多く、まれに腹痛、下血、下痢などの症状を呈することがあるが軽症であるためCTなどの検査で偶然発見される症例も多いとされている⁶⁾。腸管壁内のガスの分布に関しては一般には漿膜下に多く、次いで粘膜下である。

腸管囊腫様気腫症の診断にはX線、CT、注腸造影X線、内視鏡検査が有用であり自験例でも特徴的な所見が確認できた。最近では肺野条件での腹部CTの有用性が報告されている⁵⁾。発症部位としては小腸例が多く報告されていたが、近年では大腸例の著しい増加がみられている¹⁾。

結腸の気腫症は嚢胞状になりやすく、腸管囊腫様気腫ともいわれている。結腸全体にびまん性に見られることは少なく、通常右側か左側に偏ってみられ、直腸は通常侵されない。成人の場合、ほとんどが無症状と言われている。

医学中央雑誌で1983年1月から2006年12月までの24年間を「腸管気腫症」と「腸重積」をキーワードで検索したところ、8例認められた^{7)~14)}。PubMedで1951年1月から2006年12月までの56

年間を「pneumatosis intestinalis」と「intussusception」、もしくは「pneumatosis intestinalis」と「invagination」をキーワードに検索したところ、8件認められた^{15)~22)}。自験例を含めた17例を検討した(Table 1)。男性13例女性4例であり男性に多かった。年齢は1歳から55歳までで平均19.9歳と若年者に多い傾向を示した。併存疾患を認めた症例は17例中8例で、併存疾患を認めた患者の平均年齢は10.4歳で若年者に多く認めた。腸管囊腫様気腫の部位はすべて結腸で17例中14例は盲腸、もしくは上行結腸に存在していた。17例中13例は手術を必要とし、そのうち11例は腸切除が施行された。自験例のように1度手術以外で整復が施行されたが、後に手術が必要となった症例は認めなかった。経過はすべての症例で良好であった。

腸管囊腫様気腫症に対する治療として1日数時間程度、通常の酸素マスクにより動脈血中酸素分圧を200~300mmHg程度に保つ高濃度酸素吸入療法が有用であったという報告²³⁾がある。しかし、本例では術中整復の後に触診で気腫を認める範囲を切除した。過大手術は避けるべきであるが、短期間のうちに腸重積が再発していること、成人腸重積は小児と異なり、器質的病変が先進部となることが多く、本症例も初回時にすでに腸管囊腫様

気腫症と診断されたこと、過去の報告でも、注腸療法が4例しか施行していないなどの理由から、初回に手術を選択したほうがよかったのではないかと思われた。

文 献

- 1) Galandiuk S, Fazio VW : Pneumatosis cystoides intestinalis : a review of the literature. *Dis Colon Rectum* **29** : 358—363, 1986
- 2) Koss LG : Abdominal gas cysts pneumatosis cystoides intestinorum hominis. *Arch Pathol* **53** : 523—549, 1952
- 3) 奥芝知郎, 川村 健, 中久保善敬ほか : 気管支喘息に合併した腸管囊腫様気腫症の1例. *日臨外会誌* **65** : 971—974, 2004
- 4) 佐藤智充, 安部俊弘, 林 秀知ほか : 食道癌術後, 化学療法中に腸管囊腫様気腫症を合併した1例. *日外感染症研* **15** : 163—167, 2003
- 5) 松本力雄, 黒田 徹, 徳島秀次ほか : 十二指腸潰瘍による幽門狭窄に合併した腸管囊腫様気腫症の1例. *日消内視鏡会誌* **44** : 661—666, 2002
- 6) 藤澤律子, 松本主之, 中村昌太郎ほか : 腸管囊腫様気腫症. *胃と腸* **40** : 657—660, 2005
- 7) 小室恵二, 長山 瑛, 平沢正典ほか : 腸重積を合併した腸管囊腫様気腫症の1例. *外科診療* **25** : 117—119, 1983
- 8) 宮坂圭一, 矢内法秀, 高橋 滋ほか : 腸重積を伴った腸管囊腫様気腫症の1例. *日消誌* **85** : 302, 1988
- 9) 白岩 浩, 戸嶋和彦, 森下 透ほか : 腸重積を契機に発見された腸管囊腫様気腫症の1例. *日腹部救急医学会誌* **15** : 784, 1995
- 10) 今村俊彦, 大曾根真也, 伊集院育子ほか : 腸重積を契機に発見された腸管囊腫様気腫症の1例. *日小児栄病学会誌* **12** : 51—55, 1998
- 11) 矢内原久, 堀池重治, 岩波直美ほか : 腸重積を伴った Peumatosis intestinalis. *小児外科* **31** : 534—538, 1999
- 12) 尾山勝信, 西村元一, 石井 要ほか : 腸管気腫性囊胞症が原因となった腸重積の1例. *日腹部救急医学会誌* **20** : 353, 2000
- 13) 國末充央, 佐野 薫, 松本卓也ほか : 腸重積症にて発見された上行結腸腸管囊胞性気腫症の1例. *日消外会誌* **38** : 1240, 2005
- 14) 玉木雅子, 曾山鋼一, 橋本拓造ほか : 腸重積を契機に発見された腸管囊腫様気腫症の1例. *日臨外会誌* **67** : 1333—1337, 2006
- 15) Wang S, Goodman B : Pneumatosis coli producing colo-colic intussusception : a case report. *Australas Radiol* **32** : 483—486, 1988
- 16) Bartsch D, Nies C, Klotter HJ et al : Pneumatosis coli-eine seltene Ursache des Invaginationssileus beim Erwachsenen. *Chirurg* **64** : 349—352, 1993
- 17) Ahrar K, Watkins GE, Gardiner G : Colocolic intussusception caused by pneumatosis cystoides coli. *Abdom Imaging* **22** : 392—394, 1997
- 18) Navarro O, Daneman A, Alton DJ et al : Colocolic intussusception associated with pneumatosis cystoides intestinalis. *Pediatr Radiol* **28** : 515—517, 1998
- 19) Dubinsky MC, Deslandres C, Patriquin H et al : Pneumatosis intestinalis and colocolic intussusception complicating Crohn's disease. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* **30** : 96—98, 2000
- 20) Morrison SC, Laya B : Colo-colic intussusception in an infant with pneumatosis. *Pediatr Radiol* **31** : 494—496, 2001
- 21) Stern MA, Chey WD : Pneumatosis coli and colonic intussusception. *N Eng J Med* **345** : 964, 2001
- 22) Sugita M, Mori T, Shimada H et al : Colocolic intussusception associated with pneumatosis cystoides intestinalis after cord blood stem cell transplantation. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* **38** : 549—551, 2000
- 23) 妹尾恭一, 大久保卓次, 長谷川春喜ほか : 酸素療法が著効した pneumatosis coli の1例. *胃と腸* **19** : 1035—1040, 1984

A Case of Intussusception Associated with Pneumatosis Cystoides Intestinalis

Katsutaka Watanabe, Junichi Kamiya, Masaya Shiomi,
Yuichiro Tojima and Satoshi Kamiya
Department of Surgery, Kamo Hospital

Peumatosis cystoides intestinalis (PCI) is a rare disease caused by bowel obstruction, intestinal tract necrosis, or respiratory illness. Intussusception associated with PCI is very rare and, to our knowledge, only 16 cases have been reported worldwide. A 22-year-old man seen for abdominal pain, was found in abdominal plain computed tomography to have multiple air-filled cysts along the intestinal wall and intussusception with a multiple concentric ring sign. Colonoscopy showed that the leading part of the intestinal tract had pneumatosis shaped like a cluster of grapes. From these findings, we diagnosed intussusception associated with PCI and relieved the intussusception by colonoscopy. After a relapse on day 31 after intussusception was relieved, we conducted right colectomy. The resected specimen was edematous mainly on the ascending colon. The cause of pneumatosis was unknown. The postoperative course was good and he left the hospital on disease day 8.

Key words : intussusception, peumatosis cystoides intestinalis

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 41 : 241—246, 2008]

Reprint requests : Katsutaka Watanabe Department of Surgery, Kamo Hospital
3-17 Motoshiro-cho, Toyota, 471-0024 JAPAN

Accepted : July 25, 2007