

[症例報告]

小腸軸捻転を生じた強皮症続発性偽性腸閉塞症の一例

尾道市立市民病院 外科

岡野 由佳, 村田 年弘, 下田 篤史, 上塚 大一, 宇田 征史, 小野田 正,
川真田 修

要 旨 症例は68歳女性。1年半前に強皮症と診断され、かかりつけ医にてフォローアップされていた。腹痛が出現し増悪するため近医を受診した。CTにてfree airと小腸壁の気腫状変化、腸管拡張、腹水貯留を認めた。消化管穿孔が疑われ当院紹介受診となった。初診時のバイタルは緊急を要するような状態ではなく炎症所見も軽度であったが、近医のCT所見で腸管捻転による小腸穿孔の可能性も否定できず、同日緊急手術を施行した。黄白色混濁腹水を中等量認め、上部小腸が捻転していた。Treitz 靱帯から約50cmの小腸に浮腫状変化があり、術前CTで気腫状変化を認めた部位と考えられた。腸管に血流障害を疑う所見はなく、捻転を解除し、イレウス管を留置し手術を終了した。術後経過は良好で術後9日目に退院となった。強皮症続発性偽性腸閉塞症に小腸軸捻転を生じた症例を経験したので報告する。

Key words: 全身性強皮症, 慢性偽性腸閉塞症, 小腸軸捻転

はじめに

全身性強皮症 (systemic sclerosis, 以下, SSc) は皮膚以外にも様々な内臓病変を合併するが, 中でも消化器病変の頻度が最も高い¹⁾。また, 慢性偽性腸閉塞症(chronic intestinal pseudo-obstruction, 以下, CIP) は, 消化管蠕動運動の著しい低下・消失によって器質的閉塞が認められないにも関わらず腸閉塞症状を呈する病態の総称であり, 原因不明の特発性と, 様々な疾患に続発する二次性に分類される。この背景疾患としてはSScが最も多いとされている。また小腸軸捻転症は比較的稀な疾患であり, SScに合併する小腸捻転の報告も少ない。小腸捻転の治療は手術による捻転解除が基本である。今回われわれは, SScに続発したCIPに小腸軸捻転を生じ

た症例を経験したので報告する。

症 例

患者: 60歳代, 女性

主訴: 腹痛

既往歴: SSc

現病歴: 1年半前にSScと診断され, かかりつけ医にて通院加療をされていた。昨年末より食事摂取が困難になってきており, かかりつけ医では強皮症により消化管が硬くなっていると説明されていた。本年5月から食事摂取困難を主訴に入退院を繰り返し, 直近では10月15日に退院したばかりだった。10月19日の3時頃から腹痛(心窩部痛)が出現し, 痛みが腹部全体に広がり増強するため, 6時に近医

A case of small bowel volvulus in a patient with chronic intestinal pseudo-obstruction associated with systemic sclerosis.

Department of Surgery, Onomichi Municipal Hospital

Yuka OKANO, Toshihiro MURATA, Atsushi SHIMODA, Hirokazu UETSUKA, Masashi UDA, Masashi ONODA and Osamu KAWAMATA

を受診した。近医での精査の結果、消化管穿孔と診断されるが、近医での緊急手術困難とのことで、同日当院外科紹介となった。

入院時現症：身長 157cm, 体重 34kg, BMI 13.8, 血圧 84/58 mmHg, 脈拍 73 回 / 分, 意識清明, 腹部は著明な膨満はあるが軟らかく, 腹膜刺激症状は認めなかった。

入院時血液検査所見：軽度の炎症所見の軽度上昇と低アルブミン血症を認める以外には特記すべき異常所見は見られなかった (表 1)。

腹部 X 線検査 (臥位)：小腸の著明な拡張を認めた (図 1)。

腹部造影 CT：小腸には著明な拡張と二ボー像を認め, 上腸間膜動静脈を中心に whirl sign を認めた。造影効果は概ね保たれているが回転した先にある腸管壁に気腫状変化を認め, 壊死に陥っている可能性は否定できなかった。中等量の腹水貯留を認めた。また free-air も散在していた (図 2)。

以上から, 腹部症状に乏しく炎症所見も軽度で消化管穿孔は否定的であったが, 小腸捻転による腸管の血流障害の可能性を考慮し, 緊急手術を施行した。**手術所見：**腹腔内には中等量の乳び腹水を認めた。小腸は著明に拡張し, 上部小腸が小腸間膜基部を中

表 1. 血液検査所見

Peripheral blood					
WBC	10200	/ μ L			
RBC	395	万 / μ L			
Hb	12.3	g/dl			
Ht	37.1	%			
Plt	26.9	万 / μ L			
Serum chemistry					
CRP	0.07	mg/dl	Alb	2.7	g/dl
AST	17	U/l	T-CHO	104	mg/dl
ALT	18	U/l	BUN	19.4	mg/dl
LDH	162	IU/l	Cr	0.44	mg/dl
ALP	94	IU/l	Na	135	mmol/L
γ -GTP	14	IU/l	K	4	mmol/L
T-Bill	0.2	mg/dl	Cl	101	mmol/L
TP	4.8	g/dl			



図 1：腹部 X 線検査 (臥位)

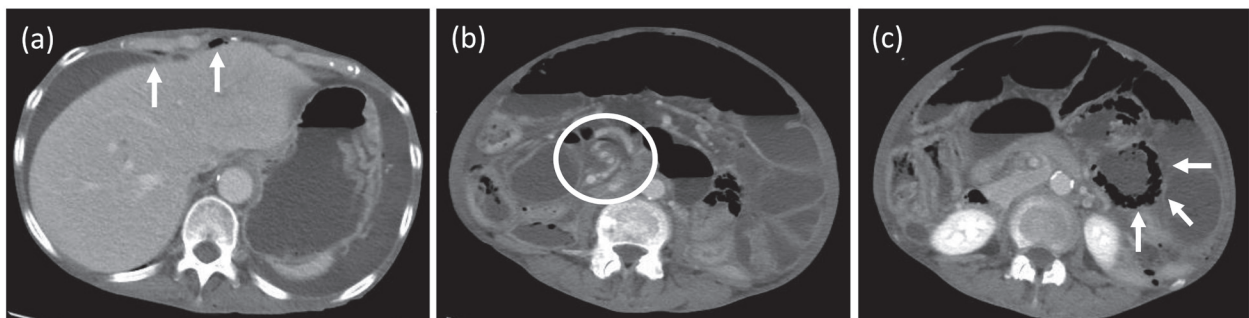


図 2：腹部造影 CT

(a) 中等量の腹水貯留と free air (↑) を認める

(b) 上腸間膜動静脈を中心に whirl sign (丸) を認める

(c) 小腸には著明な拡張と二ボー像を認め, 造影効果は概ね保たれているが回転した先にある腸管壁に気腫状変化 (↑) を認め, 壊死に陥っている可能性は否定できない

心に捻転していた。Treitz 靱帯から約 50cm の小腸に浮腫状変化や拡張が特に強く、CT で気腫状変化をきたしていた部位と考えられた。血流障害のある腸管は認めなかった。捻転の原因となる癒着や先天異常は認めなかったため、イレウス管を手動的に約 130cm の位置まで挿入し、Treitz 靱帯から回盲部までの小腸を生理的位置に配置し手術を終了した。**術後経過**：術後翌日に CIP にて加療を行っていることがわかった。術後 2 日目にイレウス管からの造影を行うと、造影剤の消化管通過時間は遷延していたが、明らかな機械的閉塞は認めず翌日には大腸まで造影剤の通過が確認できた (図 3)。このため、同日より食事を開始した。以後問題なく経過し術後 9 日目に退院となった。

考 察

SSc では皮膚以外にもさまざまな内臓病変を合併し、50-80% の患者が消化管病変を合併するとされている²⁾。その中では、嚥下障害・逆流性食道炎など食道病変によるものが多いが、上腸間膜動脈症候群や CIP、囊腫様気腫症・気腹症などの小腸病変も 45% あるとされる³⁾。また、CIP は明らかな閉塞起

点がないにも関わらず、消化管蠕動の低下によって腸閉塞症状を呈する病態の総称である⁴⁾。CIP は原因不明の特発性と、SSc、アミロイドーシス、パーキンソン病、筋ジストロフィーやミトコンドリア脳筋症などの基礎疾患に続発する二次性に分類される^{4), 5)}。SSc に CIP を合併する頻度は 14% 前後と報告されている⁵⁾。強皮症続発性偽性腸閉塞症の発症機序は、SSc による固有筋層の萎縮、粘膜下層の結合組織の増殖と硬化、小血管の循環障害や膠原線維沈着によるアウエルバッハ神経叢の圧迫、神経栄養血管の閉塞などが腸管蠕動不良を引き起こすと考えられている⁶⁾。Iida らによる本邦での CIP121 例を検討した報告によると、背景疾患としては SSc の頻度が 16.6% で最も高いとされている⁷⁾。

さらに、SSc における小腸軸捻転に関する報告は非常に少ない。医学中央雑誌にて「全身性強皮症」and「捻転」(会議録除く)で検索したところ、SSc 患者に発症した小腸軸捻転は 4 例^{8) ~ 11)}、本症例を合わせても 5 例を認めるのみであった。SSc に伴う腸管の拡張や緊張の低下、慢性的な便秘や腸管狭窄が軸捻転の誘因と考えられている^{12), 13)}。

本症例では腹部所見が乏しく炎症所見も軽度で

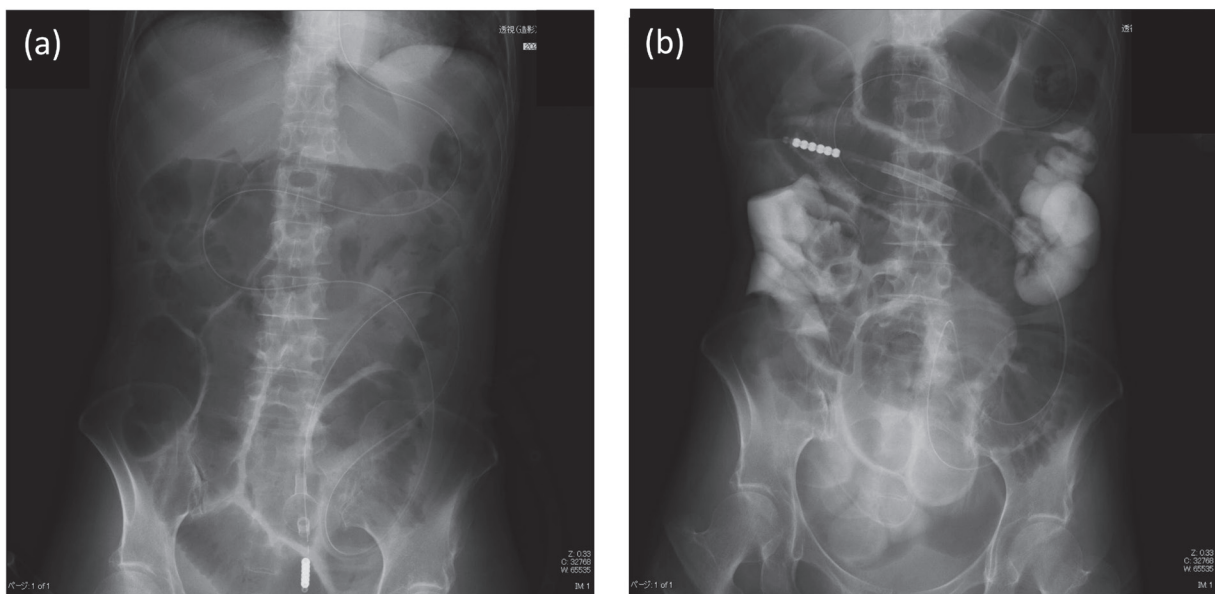


図 3：消化管造影検査 (a) 術後 2 日目 (b) 術後 3 日目
造影剤の消化管通過時間は遷延していたが (a)、明らかな機械的閉塞は認めず翌日には大腸まで造影剤の通過が確認できた (b)。

あったが、CTにて whirl sign があり腸管の気腫状変化や free air を認め、小腸捻転が原因で腸管の血流障害をきたしている可能性も否定できなかったため、緊急手術を施行した。消化管穿孔は認めず、小腸捻転により腸管内圧が上昇し、腸管内のガスが粘膜を通過し粘膜下や漿膜下に入り込み気腫を生じ、同様の機序で air が loose になった組織間隙をぬって遊離腹腔内に達して気腹症を生じたものと考えられた。SSc 患者の場合は開腹手術や腸管切除を施行された症例の予後は極めて不良であるとの報告もあり¹⁴⁾、本症例のように腹膜刺激症状がなく free air が認められたとき不要な手術が行われることのないよう手術適応の慎重な決定が必要であると考えられた¹⁵⁾。

文 献

- 1) 下田慎治, 赤星光輝, 塚本浩: リウマチ・膠原病における重要臓器障害と難治性病態—病態と治療の進歩 トピックス 重要な臓器障害 消化器. 日内会誌; 102: 2567-2574, 2013
- 2) Poirier TJ, Rankin GB: Gastrointestinal manifestations of progressive systemic scleroderma based on a review of 364 cases. Am J Gastroenterol; 58: 30-44, 1972
- 3) Dahnert W: Radiology Review Manual Fourth Edition. Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia USA, p709-711, 2000
- 4) Stanghellini V, Cogliandro RF, de Giorgio R, 他: Chronic intestinal pseudo-obstruction: manifestations, natural history and management. Neurogastroenterol Motil; 19: 440-452, 2007
- 5) Ebert EC: Gastric and enteric involvement in progressive systemic sclerosis. J Clin Gastroenterol; 42: 5-12, 2008
- 6) 東直人, 西岡亜紀, 飯塚政弘他: 全身性強皮症に伴う偽性腸閉塞に対してメトロニダゾールが有用であった1例. 日臨免疫会誌; 34: 53-61, 2011
- 7) Iida H, Inamori M, Sekino Y, 他: A review of the reported cases of chronic intestinal pseudo-obstruction in Japan and an investigation of proposed new diagnostic criteria. Clin J Gastroenterol; 4: 141-146, 2011
- 8) 青山芳樹: 強皮症に合併した囊腫様気腫症・気腹症を伴う急性腹症の1例. 日外科系連会誌; 34: 856-859, 2009
- 9) 竹原清人, 森廣俊昭, 藤原裕子他: 強皮症患者に発生した再発性小腸軸捻転症に対し腸間膜固定術を施行した1例. 日消外会誌; 44: 571-576, 2011
- 10) 宮地洋介, 村上隆啓, 牧野克俊他: 小腸軸捻を契機に診断された全身性硬化症の1例. 日臨外会誌 2017; 78 (7) . 1542-1546, 2017
- 11) 村上幹樹, 大橋浩一郎, 中尾英一郎他: 小腸軸捻転を伴う腸管囊胞状気腫症に対して手術後に全身性強皮症の診断を得た1症例. 日外科系連合学会誌; 46: 476-482, 2021
- 12) Sanderson AJ, Elford J, Hayward SJ. Case report: volvulus of the splenic flexure in a patient with systemic sclerosis. Br J Radiol; 68: 537-9, 1995
- 13) Haque U, Yardley J, Talamini M, et al. Colon stricture and volvulus in a patients with scleroderma. J Rheumatol; 26: 2268-72, 1999
- 14) Bloch F, Lepout J, Mallet L, et al: Spontaneous pneumoperitoneum in systemic sclerosis. Gastroenterol Clin Biol 8: 557 - 559, 1984
- 15) 樫野かおり, 松浦浩徳, 中西元他: 偽性腸閉塞症を伴った overlap 症候群と全身性強皮症: 臨床皮膚科 60 巻 3 号 : 247-251, 2006