

症 例

腸重積をきたした17歳男性の腸管囊腫様気腫症の1例

一宮市立市民病院外科

二 村 徳 人 鈴 木 雄 之 典 永 井 秀 征
野 本 昂 獎 横 井 彩 花 阪 井 満

症例は17歳，男性．前日からの腹痛の増悪を主訴に当院を受診した．CTにて回盲部の腫瘍性病変を先進部とした腸重積の所見を認めた．腸重積に対して高圧浣腸による整復を試みたが重積の解除は得られず，緊急手術を施行した．術中，回腸末端から上行結腸が横行結腸に嵌入する所見を認め，徒手的に整復した．右側結腸の固定不良があり，近位上行結腸には腫瘍性病変を触知した．悪性腫瘍が否定できなかったため，回盲部切除術を施行した．病理組織検査所見では腸管囊胞様気腫症（pneumatosis cystoides intestinalis；以下，PCI）と診断された．PCIは腸管の粘膜下または漿膜下に含ま気性囊胞を生じる比較的稀な疾患で，腸重積を引き起こした報告例は少ない．文献的考察を交えて報告する．

索引用語：腸管囊腫様気腫症，腸重積，若年

緒 言

腸管囊胞様気腫症（pneumatosis cystoides intestinalis；以下，PCIと略記）は，腸管壁の粘膜下層や漿膜下層に含ま気性囊胞が多発する比較的稀な疾患である．今回われわれは，腸重積を合併したPCIの1例を経験したので，文献的考察を加えて報告する．

症 例

患者：17歳，男性．

主訴：腹痛．

既往歴：カテコラミン誘発性心室頻拍．

家族歴：特記事項なし．

現病歴：前日から腹痛が出現し，増悪したため当院を受診した．CTで腸重積の所見を認め，重積腸管が広範囲であることから内視鏡的整復は困難として当科へ紹介となった．

現症：身長169cm，体重55.0kg，BMI 19.3．腹部は平坦，軟．臍部中心に圧痛を認めたが，腹膜刺激徴候は認めなかった．

入院時血液検査所見：白血球 $17,200/\mu\text{l}$ と上昇を認めた．

腹部造影CT所見（Fig. 1）：回盲部が横行結腸中央部付近まで嵌入し，重積している所見を認めた．嵌入腸管に囊状に拡張した壁内気腫を認め，横行結腸の壁は伸展していたが，造影効果は保たれていた．少量の腹水を認めた．

以上より，腫瘍性病変を有する回盲部腸管を先進部とした腸重積と診断し，高圧浣腸による整復を試みた．

注腸検査所見（Fig. 2）：ガストログラフィン造影で，

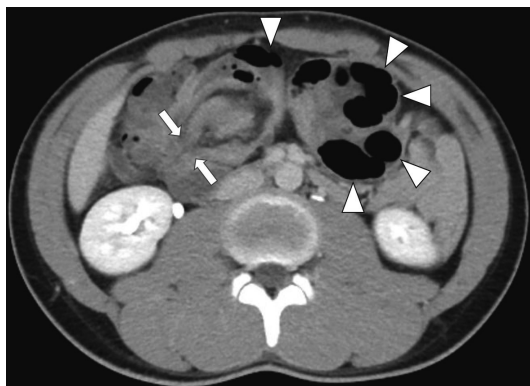


Fig. 1 腹部造影CT：回盲部が横行結腸中央部付近まで嵌入し，重積している所見を認めた（矢印）．嵌入腸管は囊状に拡張した壁内気腫を認めた（矢頭）．腸管壁の造影効果は保たれていた．

2023年2月10日受付 2023年3月16日採用

（所属施設住所）

〒491-0041 一宮市文京2-2-22

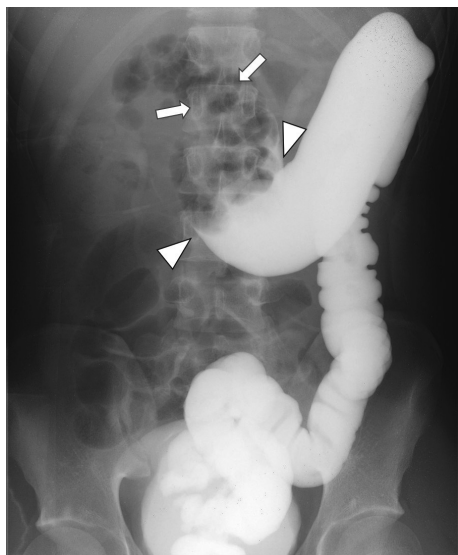


Fig. 2 注腸所見：ガストログラフィン造影で、蟹爪様所見を認め（矢頭）、口側腸管の横行結腸への腸重積の所見を認めた（矢印）。

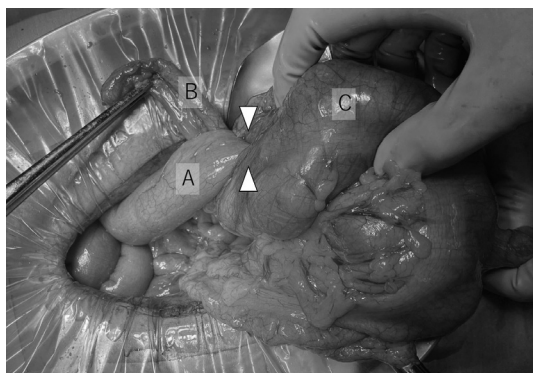


Fig. 3 手術所見：横行結腸に上行結腸・盲腸・回腸末端が嵌入していた（矢頭）（A：回腸，B：虫垂，C：横行結腸）。

蟹爪様所見を認め、口側腸管の横行結腸への腸重積の所見を認めた。高圧浣腸で整復を試みたが、完全な解除には至らなかった。非観血的整復は困難と判断し、緊急手術の方針とした。

手術所見 (Fig. 3)：横行結腸に回腸末端から上行結腸が広範囲に渡って嵌入し、腸重積をきたしていた。重積範囲が広く、徒手的な解除に難渋した。重積を解除すると、近位上行結腸に大小多数のポリープ状隆起を壁外から触知し、盲腸から上行結腸の固定不良を認



Fig. 4 切除標本肉眼所見：盲腸/上行結腸に内腔に風船のように突出する径2-3 cmの多房性の囊胞が多発していた。

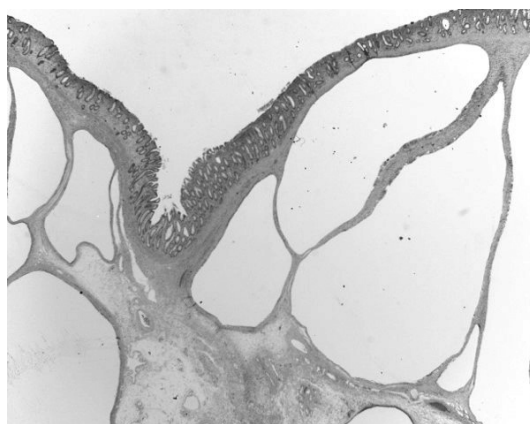


Fig. 5 病理組織学的所見：粘膜下層内に内容物のない囊胞が多発していた。囊胞壁には多核巨細胞のliningを認め、囊胞周囲には一部で組織球の集簇を認めた。囊胞上の結腸粘膜上皮は完全に保たれていた (H.E., × 10)。

めた。悪性腫瘍を否定し得ず、回盲部切除・D3郭清を施行した (A：回腸，B：虫垂，C：横行結腸)。

切除標本肉眼所見 (Fig. 4)：盲腸から上行結腸の内腔に風船のように突出する径2-3 cmの多房性囊胞の多発を認めた。

病理組織学的所見 (Fig. 5)：粘膜下層内に内容物のない囊胞が多発していた。囊胞壁には多核巨細胞のliningを認め、囊胞周囲には一部で組織球の集簇を認めた。囊胞上の結腸粘膜上皮は完全に保たれており、PCIと診断された。

術後経過は良好で、術後8日目に退院した。術後12カ月の現在まで再発を認めていない。

Table 1 腸重積をきたした腸管囊腫様気腫症の本邦報告例

症例	報告者	報告年	性別	年齢	PCI発生部位	治療前 PCI診断	治療方法	術式	開腹or腹腔鏡	再発の有無
1	今村 ⁹⁾	1998	男	10	上行結腸～S状結腸	なし	高圧浣腸→手術	下行結腸切除術	開腹	なし
2	矢内原 ¹⁰⁾	1999	女	12	上行結腸～肝彎曲部	あり	高圧浣腸	—	—	N.A.
3	玉木 ¹¹⁾	2006	男	21	盲腸～上行結腸	なし	高圧浣腸→手術	結腸右半切除術	開腹	なし
4	渡邊 ¹²⁾	2008	男	22	上行結腸	なし	内視鏡的整復→手術	結腸右半切除術	開腹	なし
5	國末 ¹³⁾	2008	男	16	盲腸～上行結腸	なし	高圧浣腸→手術	回盲部切除術	開腹	N.A.
6	西 ¹⁴⁾	2009	男	20	上行結腸	あり	高圧浣腸→高濃度酸素療法	—	—	なし
7	佐藤 ¹⁵⁾	2010	女	19	盲腸～上行結腸	なし	手術	結腸右半切除術	開腹	なし
8	小林 ¹⁶⁾	2011	男	16	盲腸	なし	手術	回盲部切除術	開腹	N.A.
9	小松原 ¹⁷⁾	2011	男	15	盲腸～上行結腸	なし	手術	回盲部切除術	開腹	なし
10	松浦 ¹⁸⁾	2012	男	50	盲腸～横行結腸	なし	高圧浣腸→手術	腸管固定術	開腹	なし
11	木水 ¹⁹⁾	2012	男	14	回盲部～上行結腸	あり	高圧浣腸→高濃度酸素療法	—	—	なし
12	小松 ⁴⁾	2012	男	18	盲腸～上行結腸	なし	手術	回盲部切除術	開腹	なし
13	小久保 ²⁰⁾	2012	男	23	N.A.	あり	手術	重積解除	開腹	なし
14	後藤 ²¹⁾	2014	男	17	盲腸～上行結腸	あり	内視鏡的整復→手術	結腸右半切除術	N.A.	N.A.
15	矢野 ²²⁾	2014	男	17	盲腸～上行結腸	あり	高圧浣腸→手術	結腸右半切除術	腹腔鏡	なし
16	田辺 ²³⁾	2014	男	21	盲腸～上行結腸	あり	高圧浣腸→手術	回盲部切除術	開腹	なし
17	武井 ²⁴⁾	2015	男	2	上行結腸～横行結腸	なし	手術	重積解除	開腹	なし
18	寺井 ²⁵⁾	2016	女	43	N.A.	あり	内視鏡的整復	—	—	なし
19	齋藤 ²⁶⁾	2016	男	17	上行結腸	なし	手術	結腸右半切除術	開腹	N.A.
20	平山 ²⁷⁾	2017	男	12	N.A.	あり	内視鏡的整復	—	—	なし
21	滝口 ²⁸⁾	2017	女	17	上行結腸	あり	高圧浣腸	—	—	なし
22	川島 ²⁹⁾	2018	男	17	上行結腸～横行結腸	なし	内視鏡的整復→手術	結腸右半切除術	腹腔鏡	なし
23	大住 ³⁰⁾	2018	男	20	盲腸～上行結腸	なし	高圧浣腸→手術	結腸右半切除術	腹腔鏡	N.A.
24	片桐 ³¹⁾	2019	男	28	盲腸～上行結腸	なし	手術	回盲部切除術	開腹	なし
25	三森 ³²⁾	2020	男	13	上行結腸～横行結腸	なし	高圧浣腸→高濃度酸素療法	—	—	あり
26	三森 ³²⁾	2020	男	10	上行結腸～横行結腸	なし	高圧浣腸→高濃度酸素療法	—	—	あり
27	Matubara ³³⁾	2020	男	4	上行結腸	なし	高圧浣腸→手術	重積解除	腹腔鏡	なし
28	Hosokawa ³⁴⁾	2020	女	13	上行結腸	あり	手術	重積解除	開腹	N.A.
29	自験例		男	17	上行結腸	なし	高圧浣腸→手術	回盲部切除術	開腹	なし

考 察

腸管囊胞様気腫症 (PCI) は1730年に Du Vernori により初めて報告され¹⁾, 腸管壁の粘膜下, または漿膜下に多数の囊胞様気腫と腸管内腔にポリポーシス様の多発性腫瘍性病変が生じる疾患である. Koss らの報告によると続発性が85%, 特発性が15%である²⁾. 続発性の原因として機械説・細菌説・化学説などが提唱されているが定まっておらず³⁾, 背景の基礎疾患として膠原病・炎症性腸疾患・慢性閉塞性肺疾患なども挙

げられている²⁾. 性別は3.5: 1で男性に多いとされ³⁾, 発症年齢は40歳以降に多く, 特に60歳以上の罹患率が高いとされる⁴⁾.

発症部位は, 食道から直腸までの全消化管に発生し, 複数の部位に重複して発生することもある. 頻度は小腸と大腸に多く⁵⁾, 大腸病変の中では右側結腸に多い傾向がある⁴⁾. 原因別では, 特発性で左側結腸, 続発性では小腸および右側結腸に多い⁶⁾.

PCIの臨床症状としては, 腹痛・便秘・下痢などが

見られることもあるが、無症状のことが多い。診断はCTもしくは内視鏡検査でされることが多く、CTにおいては腸管の壁内気腫を認めること、内視鏡検査においてはぶどう房状に多発する粘膜下腫瘍様隆起が特徴的な所見である。

治療は高濃度酸素療法などの保存的治療や、背景となる基礎疾患がある場合は原疾患の治療が第一選択であるが、無症状の場合は経過観察も可能である。高濃度酸素療法の機序は、動脈血酸素分圧が上昇し、その酸素が気腫内の窒素などの成分と置換され、腸管内の嫌気性ガス産生菌が酸素吸入により死滅するとことで改善すると述べられている⁷⁾。関田らによると、2005年までに本邦において高濃度酸素療法は12例に施行されており、10例は症状の軽快を認めている⁸⁾。

医学中央雑誌で1998年から2020年の間で「腸管囊腫様気腫症」「腸重積」をキーワードに検索したところ27報(28例)の報告が見られた^{4)9)~31)}。これらに自験例を加えた29例について検討を行った(Table 1)。男性が多く(83%)、20代以下の若年者に多い(76%)傾向があった。

一般的に腸重積は小児で回盲部に多く、成人では腫瘍を含めた器質的疾患が原因となることが多い。検討した全例で右側結腸に発症していることから、悪性腫瘍のリスクが少ない若年層において、腫瘍性病変を伴う右側結腸の腸重積では、原因としてPCIを鑑別に挙げる必要があると考えられる。また、自験例のように右側結腸の固定不良が多く見られることから⁴⁾¹¹⁾¹²⁾¹⁸⁾³¹⁾、腸管の固定不良による慢性的な機械的刺激を原因とした、続発性PCIの可能性もあるかもしれない。

診断に関しては、ほぼ全例でCTにより腸重積の診断がされていた一方で、特徴的な壁内気腫所見を認めながらもかわらず、術前PCIの診断に至った症例は少なく、病理検査により診断された症例が大半であった。自験例も術前および術中所見では診断に至らなかった。

腸重積に対する治療は、外科的治療が多く行われていたが(72%)、高圧浣腸や内視鏡といった内科的治療による整復例もあった(28%)。また、外科的治療を行った21例のうち、12例で術前に内科的治療が行われており、いずれも重篤な合併症の発生はなかった。このことから、内科的治療で半数程度は整復可能であり、明らかな腸管壊死が疑われない症例では、第一選択として内科的整復を試みるのが良いと思われる。外科的治療が行われた症例のうち、16例で腸管の切除が

施行されており、5例は整復や腸管固定術のみであった。腸管切除を行わなかった5例中2例は術前CTで、2例は術中所見でPCIと診断されており、術前にPCIと診断されれば若年患者の腸管切除を回避できるかも知れない。

腹腔鏡手術が4例で施行されており、より低侵襲な術式として選択肢になり得るが、整復手技が困難であることと整復後の腸管の触知による診断補助が難しいことから、重積が軽度な症例に限定されるであろう。

長期経過に関しては、内科的整復のみを行った後、腸重積を繰り返す症例がある一方で¹²⁾²²⁾²³⁾²⁹⁾³⁰⁾、外科的治療を行った症例では再発を認めなかった。また、腸管固定術のみを施行した症例¹⁸⁾では、術後2年でPCI所見の残存は見られるものの、腸重積の再発はなく、腸重積の予防に有効である可能性がある。ただし、報告例は少数にとどまっており、術式の選択には今後の症例の集積が必要と考えられた。

結 語

今回われわれは腸重積を発症したPCIの症例を経験した。若年患者の右側結腸の腸重積では、PCIを鑑別に挙げるのが肝要と考えられた。

利益相反：なし

文 献

- 1) Du Vernori GJ: Aer intestinourun tamsubextima quam intima inclusus. *Obsergationae Anatomicae Acad Scient Lmp Petropol* 1730; 5: 213-215
- 2) Koss LG: Abdominal gas cysts (pneumatosis cystoides intestinorum hominis); an analysis with a report of a case and a critical review of the literature. *AMA Arch Pathol* 1952; 53: 523-549
- 3) Heng Y, Schuffler MD, Haggitt RC, et al: Pneumatosis Intestinals: a review. *Am J Gastroenterol* 1995; 90: 1747-1758
- 4) 小松聖史, 隈元謙介, 今泉英子他: 若年男子に発症し腸重積の原因となった腸管囊腫様気腫症の1例. *日消外会誌* 2012; 45: 778-784
- 5) 齋藤大祐, 林田真理, 三浦みき他: 腸管囊胞様気腫症の臨床的検討. *日消誌* 2015; 112: 494-499
- 6) 澤 律子, 松本主之, 中村昌太郎他: 腸管囊胞様気腫症. *胃と腸* 2005; 40: 657-660

- 7) 飯村光年, 飯塚文瑛, 岸野真衣子他: 腸管囊腫様気腫症 (PCI) と気腹を合併した特発性慢性偽性腸閉塞 (CIIP) に高圧酸素療法 (HBO) が著効した1例. 日消誌 2000; 97: 199-203
- 8) 関田祥久, 藤森俊二, 江原彰仁他: 高濃度酸素療法が著効した多発性筋炎合併腸管囊腫状気腫症の1例. Prog Dig Endosc 2005; 66: 35-38
- 9) 今村俊彦, 大曾根真也, 伊集院育子他: 腸重積を契機に発見された腸管囊腫様気腫の1例. 日小児栄消病会誌 1998; 12: 51-55
- 10) 矢内原久, 堀池重治, 岩波直美他: 腸重積症を伴ったPneumatosis intestinalis. 小児外科 1999; 31: 534-538
- 11) 玉木雅子, 曾山鋼一, 橋本拓造他: 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 2006; 67: 1333-1337
- 12) 渡邊克隆, 神谷順一, 塩見正哉他: 腸管囊腫様気腫症による腸重積の1切除例. 日消外会誌 2008; 41: 241-246
- 13) 國末充史, 佐野 薫, 河本和幸他: 腸重積症で発見された上行結腸腸管囊腫性気腫症の1例. 日腹部救急医会誌 2008; 28: 493-496
- 14) 西 鉄生, 大屋久晴, 永田二郎他: 保存的に治療しえた腸重積にて発症した腸管囊腫様気腫症の1例. 日腹部救急医会誌 2009; 29: 797-801
- 15) 佐藤梨枝, 下村 誠, 谷口健太郎他: 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 2010; 71: 2052-2056
- 16) 小林ゆかり, 田上修司, 村田一平他: 腸管囊腫様気腫症が先進部となった腸重積の1例. 日臨外会誌 2011; 72: 2866-2870
- 17) 小松原隆司, 藤本康二, 坂野 茂他: 腸管囊腫性気腫症による腸重積の1例. 臨外 2011; 66: 1673-1677
- 18) 松浦正徒, 結城 敬, 真岸亜希子他: 腸重積を契機に発見された腸管囊腫様気腫症の1手術症例. 日消外会誌 2012; 45: 459-465
- 19) 木水友一, 松尾久実代, 川上展弘他: 腸重積を契機に発見された腸管囊腫様気腫症の1例. 日小児会誌 2012; 116: 555-559
- 20) 小久保健太郎, 林 昌俊, 飯田 豊他: 潰瘍性大腸炎経過中に発症した腸管囊腫様気腫症による腸重積の1例. 日臨外会誌 2012; 73: 3197-3202
- 21) 後藤康彦, 仲谷朋久, 野口地塩他: 腸重積を合併した腸管囊腫性気腫症の1例. Gastroenterol Endosc 2014; 56: 3805-3809
- 22) 矢野有紀, 吉松和彦, 横溝 肇他: 腹腔鏡下手術を施行した腸管囊腫様気腫症による腸重積の1例. 手術 2014; 68: 1745-1748
- 23) 田辺義明, 毛利 貴, 椎名正明他: 短期間に腸重積を繰り返した腸管囊腫様気腫症の1例. Prog Dig Endosc 2014; 85: 116-117
- 24) 武井麻里子, 石毛 崇, 羽鳥麗子他: 腸管囊腫様気腫症を合併7した全身型若年性特発性関節炎. 日小児会誌 2015; 119: 1509-1513
- 25) 寺井 潔, 横山 潔, 竹本安宏他: 内視鏡的整復により回復した腸管囊腫様気腫症による成人腸重積の1例. Prog Dig Endosc 2016; 88: 146-147
- 26) 齋藤 勝, 仲野 宏, 渡辺洋平他: 腸重積により緊急手術を施行した腸管囊腫様気腫症の1例. 福島医誌 2016; 66: 182-186
- 27) 平山 裕, 吉田 索, 飯沼泰史他: 腸重積を合併した小児腸管囊腫様気腫症の1例. 小児内科 2017; 72: 1269-1273
- 28) 滝口進也, 佐竹昌也, 今泉理枝他: 腸重積を契機に診断し高圧酸素療法を含む保存的治療が奏効した腸管囊腫様気腫症の1例. 臨外 2017; 72: 1269-1273
- 29) 川島龍樹, 横田 満, 橋田和樹他: 腸管囊腫様気腫症を先進部として反復した腸重積の1例. 日臨外会誌 2018; 79: 1479-1484
- 30) 大住幸司, 大石 崇, 西原佑一他: 腸重積で発症し腹腔鏡下切除術を施行した腸管囊腫様気腫症の1例. 日腹部救急医会誌 2018; 38: 1047-1050
- 31) 片桐 忍, 和城光庸, 北原拓哉他: 腸管囊腫様気腫症による腸重積の1例. 日臨外会誌 2019; 80: 1147-1151
- 32) 三森宏昭, 絹巻暁子, 幡谷浩史: 腸管囊腫様気腫症による腸重積症. 日小児会誌 2020; 124: 1542-1547
- 33) Matsubara Y, Nanri A, Watanabe K, et al: A case of pneumatosis cystoides intestinalis complicated by intussusception. Pediatr Int 2020; 62: 987-988
- 34) Hosokawa T, Shibuki S, Tanami Y, et al: Complications of pneumatosis intestinalis: Scrotal emphysema and intussusception. Pediatr Int 2020; 62: 1396-1397

A CASE OF INTUSSUSCEPTION CAUSED BY PNEUMATOSIS CYSTOIDES INTESTINALIS
IN A 17-YEAR-OLD MAN

Norito FUTAMURA, Yunosuke SUZUKI, Hideyuki NAGAI,
Kosuke NOMOTO, Ayaka YOKOI and Mitsuru SAKAI
Department of Surgery, Ichinomiya Municipal Hospital

A 17-year-old man presented with intensifying abdominal pain which occurred on the day before. Abdominal CT findings showed intussusception caused by a mass lesion in the ileocecal region. High-pressure enema performed for diagnosis and therapy was unsuccessful and we could not reduce the intussusception. Therefore, emergency operation was performed. Surgical findings confirmed intussusception in the transverse colon, which was arising from the ascending colon, cecum and ileum. After manual reduction of the intussusception, we could not completely exclude a possibility of malignant tumor. Accordingly, we performed ileocecal resection. Pathological examination revealed that the tumor was pneumatosis cystoides intestinalis (PCI). PCI is a comparatively rare disease that produces a large number of aerobic cyst under the submucosal or subserosal structures of the digestive tract wall. Few studies have reported intussusception with PCI. We report this case with some literature review.

Key words : pneumatosis cystoides intestinalis, intussusception, young patient
