症例報告

乳癌術後、骨転移再発の経過中に生じた腹腔内遊離ガスを伴う
腸管囊腫様気腫症の1例小西 啓夫¹⁾ 岡村 寛子¹⁾ 川合 寛治¹⁾ 相良 幸彦¹⁾¹⁾堀川病院外科

症例は74歳女性で、両側乳癌術後に胸腰椎への骨転移再発を来したのでオキシコドンの内服による緩和療法を行っていたが、腰痛の増強、倦怠感を主訴に当院を受診した。癌性疼痛の増強を考え腹部CTを施行したところ、腹腔内遊離ガス像と腸管壁の気腫状変化を認めた。オキシコドンの影響で腹部所見が不明瞭であり消化管穿孔を否定できなかったため、診断も兼ねた開腹術を行った。手術所見では回腸に約10 cmにわたり腸管壁と腸間膜に気腫状変化を認めたが穿孔部は見られなかった。乳癌の小腸転移の可能性も考え回腸部分切除を施行したが、術後の病理組織学的診断にて腸管囊腫様気腫症と診断された。腸管囊腫様気腫症の報告例は近年増加しており診断や治療について一定の見解は示されつつあるが、当症例は緩和療法中に腹腔内遊離ガスを伴い発症したことで診断および治療方針の決定に苦慮したので若干の文献的考察を加えて報告する。

キーワード：腸管囊腫様気腫症、腹腔内遊離ガス、緩和治療

はじめに

腸管囊腫様気腫症（pneumatosis cystoides intestinalis；以下、PCIと略記）は、腸管壁に多房性または直線状の含気性嚢胞を形成する良性疾患である¹⁾。近年では報告症例数が増加しておりPCIの病態、診断、治療に対して一定の見解が認められつつあるが、腹腔内遊離ガスを伴う症例の場合は消化管穿孔との鑑別を必要とし診断および治療方針の決定に苦慮することがある。今回、我々は乳癌の術後再発に対して緩和治療を行っていた患者に腹腔内遊離ガスを伴うPCIの症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：74歳、女性

主訴：腰部痛、全身倦怠感

家族歴：特記事項なし。

既往歴：他院にて1992年に右乳癌に対し乳房全摘術施行（病理組織学的検査所見不明）。2008年に左乳癌に対して乳房全摘術施行（T1, N0, M0, stage I）。2009年にPET-CTで胸腰椎への多発骨転移を認めたので計30 Gyの放射線治療を行った。その他抗癌剤やビスホスホネート製剤による治療を行うも副作用が強く中止となった。2009年に当院へ転院となり腰背部痛を主とする癌性疼痛に対し、1日20 mgのオキシコドンの内服を中心とした緩和療法を外来通院で行っていた。オキシコドンの副作用として便秘のみが認

Fig. 1 Abdominal CT shows intraabdominal free air (black arrows) and pneumatosis in the intestinal wall and mesentery (white arrowheads).

められたので、患者本人の管理下に緩下剤を頓用で使用していたが排便コントロールは不良であった。

現病歴：2012 月 10 月に腰痛の増強，全身倦怠感を主訴に外来を受診した。転移性病変の進行による癌性疼痛の増強を考えて胸部 CT を行ったところ，腹腔内遊離ガス像および腸管壁の気腫状変化を認めたので精査加療を目的に入院となった。

入院時現症：身長 158 cm，体重 65 kg，体温 36.3°C。意識清明。血圧，脈拍に異常なく，腹部は軟であったが軽度に膨満していた。自発痛，圧痛はなく筋性防御や反跳痛などの腹膜刺激症状は認めなかった。

入院時血液検査所見：白血球数は 7,800/ μ l と正常範囲内であった。CRP は 7.8 mg/dl と上昇しており，何らかの炎症が潜在していると考えられた。同様に CEA 6.5 ng/ml，CA15-3 110 U/ml と腫瘍マーカーも上昇していたが以前の値と比べて変わりはない。その他の検査値には異常は認めなかった。

腹部単純 CT 所見：右上腹部を中心に腹腔内遊離ガス像の散在を認めた。また，左上腹部の小腸壁，腸間膜に多発する気腫状変化を認めたが門脈血ガス症は見られず，腸管の血流障害を疑う所見も認めなかった。腹水の貯留，リンパ節の腫脹や腫瘍性病変は認めなかった (Fig. 1)。

以上の検査結果，所見より腹腔内遊離ガスの原因として PCI も考えたが，画像では描出できない乳癌の腸管転移病変や腸管壊死などによる消化管穿孔なども疑った。血液検査所見で重度の炎症所見を認めなかったのは，腹腔内にはガスのみが遊離し腸管内容物の漏出はなく穿孔部も早期に閉鎖した可能性を考えた。また，腹部所見が乏しかったのはオキシコドンにより症状がマスクされているのではないかと考えた。全身状態が良好なうちに診断を確定し治療方針を決定したかったが，画像や所見などによる確定診断は困難と考え診断も兼ねた開腹手術を施行した。

Fig. 2 Surgical findings: A number of various-sized vacuoles were observed in the subserosal layer of the ileum and mesoileum.

Fig. 3 Macroscopic appearance of the resected specimen demonstrating multiple subserosal gas-filled cystic lesions in the ileum.

手術所見：上腹部正中切開にて開腹すると、腹腔内には多量の気体貯留を認めたが腹水は認めなかった。回腸末端から約 50 cm の回腸に 10 cm にわたり腸管の漿膜下と腸間膜に気腫の多発を認めた。しかし、明らかな壊死腸管や穿孔部位は認めず、腫瘤も触知しなかった。気腫病変を含む回腸を部分切除し手術を終了した (Fig. 2)。

切除標本肉眼所見：切除した回腸の漿膜下と腸間膜に気腫性囊胞の多発を認めたが、粘膜面には気腫性囊胞や腫瘤病変は認めなかった (Fig. 3)。

病理組織学的検査所見：腸管壁の筋層から漿膜下に多発する囊胞性病変を認めた (Fig. 4A)。囊胞壁は一層の平坦な細胞と薄い線維性組織により形成されていた (Fig. 4B)。以上の所見から、病理組織学的に PCI と診断された。

術後経過は良好で、第 35 病日に退院した。術前に訴えていた腰痛は術後も改善しなかったのでオキシコドンの容量を 1 日 30 mg に増量すると消失した。したがって、腰痛の原因は癌性疼痛の悪化であったと考えられた。また、便秘が今回の病態に影響した可能性を考え頓用で使用していた緩下剤を定日内服に変更し強化した。現在は術後 1 年を経過しているが全身状態は落ち着いており、PCI の再発も認められていない。

Fig. 4 A: Histopathological findings showing various-sized cysts in the muscle and subserosal layer (HE staining, ×40). B: Histopathological findings showing the inner surface of the wall of cysts composed of a lining of flat cells (HE staining, ×100).

考 察

PCIは腸管壁の粘膜下あるいは漿膜下に多数の含気性嚢胞を形成する比較的まれな疾患であるが、近年では画像診断の進歩や消化管内視鏡の普及などにより報告される症例数は増加している²⁾。症例が集積されることでPCIに関する病態の理解は進んでおり病因、診断、治療に関しては概ね一致した見解が得られてきている。しかし、自験例のように腹腔内遊離ガスを伴った場合は消化管穿孔との鑑別が必要となり診断、治療に苦慮している症例が散見される。

PCIは原因が特定できない特発性と何らかの基礎疾患に併発する続発性に大別される。発生頻度としては続発性が多く、特発性の15%に対し続発性は85%と報告されている³⁾。また、発生部位では小腸型、大腸型、小腸大腸型に分類されJamart⁴⁾の集計では各々42%、36%、22%となっている。続発性PCIの基礎疾患としては、膠原病、消化性潰瘍、炎症性腸疾患、閉塞性肺疾患、白血病、臓器移植後などが挙げられるが他にステロイドの長期使用、化学療法剤、免疫抑制剤、 α グルコシダーゼ阻害剤などが要因となる症例も報告されている^{5)~7)}。発生機序としては機械説、細菌説、呼吸器説、化学説などが提唱されているが⁸⁾⁹⁾、自験例においてはオピオイドの内服が原因となった機械説と担癌状態が原因となった細菌説が混合した状態で発症したものと考えられた。すなわちオピオイドにより腸管運動が低下し内容物が貯留することで内圧が上昇し、腸管内ガスが微細な腸管粘膜の損傷部位から腸管壁内に侵入した。また、担癌状態により腸管粘膜の損傷部の治癒が遷延することでガス産生菌の腸管壁への侵入が助長され、さらに免疫力の低下により菌の増殖を抑えられなかったと考えられた。しかし、病理組織学的検査所見では嚢腫様気腫の周囲への炎症細胞の浸潤は認められず、当症例における明らかな病態は不明であった。

治療は保存的治療が基本であり具体的には原因薬剤の中止、絶食、抗生剤投与などであるが高圧酸素療法や酸素吸入療法の有効性なども報告されている¹⁰⁾¹¹⁾。しかし、確立された酸素の投与法はなく呼吸器疾患を併発する患者への高濃度の酸素投与は全身状態の悪化を招く危険があり適応はない。また、モチリン受容体と結合し腸蠕動を更新させるエリスロマイシンや嫌気性菌を対象としたメトロニダゾールの使用が有効であった報告例も見られる¹²⁾¹³⁾。いずれにしてもPCIに対しては腸管の切除などの外科的治療の必要はない。外科的治療が必要なPCIとは腸管穿孔や壊死に伴って生じる腸管気腫であり厳密にはPCIと区別されるものとする¹⁴⁾。したがって、腹腔内遊離ガスを認める症例であっても原因がPCIであると診断さ

れば保存的治療が適応となる¹⁵⁾。しかし、一方で腹腔内遊離ガスの原因となる疾患の中には早急な外科的治療を要するものも存在し、その鑑別は重要である。

腹腔内遊離ガスがPCIにより発生する機序として、漿膜面に存在する気腫性囊胞の破裂や腸管内のガスが疎になった組織間隙をぬって腹腔内に達することがいわれており、小腸型で15%、大腸型で2%の発生で頻度はそれ程多くない⁴⁾。したがって、腹腔内遊離ガスの原因疾患として他疾患に対しPCIを考える機会は多くはなく、また基礎疾患や内服薬剤によっては鑑別診断が難しくなる。自験例においても腹腔内遊離ガスの原因疾患としてPCIも考慮したが、乳癌術後の多発骨転移であった状態に関連付けて腸管への転移病巣などが直接あるいは腸管の血流障害を招くことで消化管穿孔を起こしている可能性も除外できなかった。また、オピオイドの内服により腹部所見が不明瞭であったのも診断を困難にさせた。患者の入院時の全身状態は比較的安定していたが、担癌状態が影響して急激な全身状態の悪化をおこす可能性を考えると確定診断のつかないまま保存的治療を行うのは危険と判断し、十分な説明のもとに診断的治療として開腹術を選択した。このような腹腔内遊離ガスを伴うPCIの症例において診断や治療などにどのような傾向があるのか見るために過去の報告例を検討した。

医学中央雑誌にて1983年から2012年の期間で「腸管囊腫様気腫」と「腹腔内遊離ガス」で会議録を除き詳細がわかる症例のみで検索すると91例の報告を認める。その内訳は男性42例、女性49例で、特発性PCIが14例(15.4%)、続発性PCIが77例(84.6%)でありPCI症例全体での割合³⁾とほぼ同等であった。一方で発生部位については小腸型が67例(73.6%)と大半を占めているのが特徴的であった。基礎疾患として主だったものは強皮症や多発筋炎などの膠原病28例、統合失調症7例、肺疾患3例、消化性潰瘍3例、担癌状態9例などが見られ白血病や臓器移植後は認めなかった。また、薬剤としては膠原病などと重複する症例もあるがステロイド使用が11例、 α グルコシダーゼ阻害剤が8例、化学療法あるいは放射線療法が4例、有機溶剤の使用が1例認められた。診断については91例中半数の47例がPCIと診断され、開腹術を行った1例を除き他の46例はいずれも保存的治療にて改善していた。一方で44例には明確な診断がつかず開腹術が施行されている。したがって、腹腔内遊離ガスの原因をPCIと診断し保存的治療を選択できた症例は全体の50.5%と約半数程度であり、正確な診断、治療法を選択するのは容易ではないといえる。また、開腹下の治療としては腹腔内洗浄などが主であるが、一方で腸管の切除は全体で14例行われていた。しかし、腸管切除例の12例(85.7%)は2006年以前に行われており、近年ではPCIの診断がつけば腸管を切除する必要性はないのは周知されてきている。自験例の治療で腸管切除を行った理由は、直視下でも転移性腫瘍の可能性を否定できなかったのと、病変が小範囲であったので切除しても患者への負担が少なく術後に憂いを残さなくてすむと判断したからである。しかしながら、術後の病理組織学的検査所見では切除腸管の病変はPCIのみであり腸管切除は必要なくover surgeryであったのは否めなかった。また、報告例では2例に腹腔鏡による診断的治療が行われている¹⁴⁾¹⁶⁾。自験例でも腹腔鏡下による手術の適応を検討したが、患者の病態より手術時間を短縮する必要性を考えると執刀医の腹腔鏡下操作技術の問題より開腹術を選択した。本症例における治療法は本来のPCIの治療方針から考えると逸脱していたといえる。その原因はPCIに対する理解不足が主ではあるが、患者が乳癌の骨転移再発の状態であり癌性疼痛に対してオピオイドを内服していたことも少なからず影響したと考える。したがって、過去に担癌の患者において腹腔内遊離ガスを伴ってPCIを発症した同様の症例について検討した。

医学中央雑誌にて1983年から2012年の期間で「腸管囊腫様気腫」、「腹腔内遊離ガス」、「癌」で会議録を除いて検索すると16例のみ報告を認めるが、さらに癌の再発や根治に至らない症例に限定すると4例^{17)~20)}しか見られず、根治を望めない担癌患者にPCIが腹腔内遊離ガスを伴って発症するのは非常にまれであるといえる。この4例に自験例を加えて検討してみると、診断時に転移を伴っていた肺癌の症例が1例、肺癌の再発例が2例、原発の食道癌に対する化学放射線治療中が1例である(Table 1)。2例がPCIと診断され保存的治療が行われ、2例は消化管穿孔を疑い開腹術を行っている。特に松田ら¹⁷⁾の報告例の

Table 1 Case reports of PCI with intraabdominal free air in cancer hosts

No.	Author	Year	Age/Sex	Primary disease	Recurrence	Therapy for primary disease or recurrence	Location of PCI	Treatment of PCI
1	Matsuda ¹⁷⁾	2004	62/M	lung cancer	lymph node	palliative therapy	jejunum, ileum	laparotomy
2	Wada ¹⁸⁾	2006	78/M	lung cancer	lymph node right lung	observe	jejunum, ileum	laparotomy
3	Arikawa ¹⁹⁾	2009	58/F	esophageal cancer	none	chemoradiotherapy	ileum, colon	conservative
4	Uryuu ²⁰⁾	2010	60/M	lung cancer brain metastasis	none	chemotherapy, steroid	jejunum, ileum	conservative
5	Our case		72/F	breast cancer	bone	palliative therapy	ileum	ileal resection

み自験例と同様にオピオイドの内服があり腹部所見が不明瞭であったため開腹術に至っている。しかし、術中に PCI の診断をつけて腸管切除までは行われなかった。担癌患者においては予後を見据えながら合併して発症してくる疾患に対し診断と治療法の選択を慎重に行う必要があるが、自験例においてそれを再認識させられた。

近年の癌治療においては治療法とともに緩和療法なども進歩しており患者の予後は改善を示している。したがって、その経過中に腹腔内遊離ガスを伴う PCI を経験する機会が今後増加していく可能性もある。経過が長くなることで病態が複雑になっている担癌患者では画像診断や身体所見のみでは腹腔内遊離ガスの原因が特定できない場合があり、PCI も念頭において診断、治療を進めていく必要があると考えられた。

利益相反：なし

文献

- 1) 藤沢 律子, 松本 主之, 中村 昌太郎, 檜沢 一興, 飯田 三雄. 腸管囊胞様気腫症. 胃と腸. 2005;40:657-60.
- 2) 橋本 敏章, 古井 純一郎, 北島 正親, 井上 諭, 井上 悠介. 急性胆嚢炎を契機に発見された気腹を伴った腸管囊腫様気腫症の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌. 2011;72:3130-4.
- 3) Koss LG. Abdominal gas cysts (pneumatosis cystoides intestinalis); an analysis with a report of a case and a critical review of the literature. AMA Arch Pathol. 1952;53:523-49.
- 4) Jamart J. Pneumatosis cystoides intestinalis. A statistical study of 919 cases. Acta Hepato-gastroenterol. 1979;26:419-22.
- 5) 奥芝 知郎, 川村 健, 中久保 善敬, 直江 和彦, 渡辺 不二夫. 気管支喘息に合併した腸管囊腫様気腫症の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌. 2004;65:971-4.
- 6) 粕本 博臣, 成山 真一, 山本 貴敏, 金光 秀史, 西田 賀計, 伊東 芳江, ほか. α -グルコシダーゼ阻害剤内服中の血液透析患者に腹腔内遊離ガス像を伴う腸管囊腫様気腫症を発症した 1 例. 日本透析医学会雑誌. 2010;43:939-43.
- 7) 青山 芳樹. 強皮症に合併した囊腫様気腫症・気腫症を伴う急性腹症の 1 例. 日本外科系連合学会誌. 2009;34:856-9.
- 8) 渡邊 克隆, 神谷 順一, 塩見 正哉, 東島 由一郎, 神谷 諭. 腸管囊腫様気腫症による腸重積の 1 切除例. 日本消化器外科学会雑誌. 2008;41:241-6.
- 9) 宇野 雄祐, 平野 誠, 野澤 寛, 原 拓央, 稲木 紀幸, 橘川 弘勝. 精神分裂病患者に発症した腸管囊腫様気腫症の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌. 2003;64:1654-7.
- 10) Azzaroli F, Turco L, Ceroni L, Galloni SS, Buonfiglioli F, Calvanese C, et al. Pneumatosis cystoides intestinalis. World J Gastroenterol. 2011;17:4932-6.
- 11) 町田 宏, 水上 博喜, 坂本 信之, 櫻井 修, 幡谷 潔, 岡 壽士. 手術後に高圧酸素療法を施行した腸管囊腫様気腫症の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌. 2002;63:2463-6.
- 12) 白子 順子, 吉川 武志, 大西 隆哉, 中井 実, 浅野 寿夫, 川上 剛, ほか. 麻痺性イレウスと腸管囊腫様気腫, 気腹を合併した Overlap 症候群 (強皮症, 多発性筋炎) の 1 剖検例. 日本消化器病学会雑誌. 2000;97:1031-7.
- 13) 東 直人, 西岡 亜紀, 飯塚 政弘, 松井 聖, 藤田 計行, 日野 拓耶, ほか. 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一例. 日本臨床免疫学会誌. 2011;34:53-61.
- 14) 川副 友, 上田 健太郎, 山添 真志, 岩崎 安博, 川嶋 秀治, 島 幸宏, ほか. 診断および治療に腹腔鏡が有用であった腸管囊腫様気腫症の 1 例. 日本腹部救急医学会雑誌. 2011;31:827-30.
- 15) Arkanoglu Z, Aygen E, Camci C, Akbulut S, Basbug M, Dogru O, et al. Pneumatosis cystoides intestinalis: A single center

experience. World J Gastroenterol. 2012;18:453-7.

- 16) 久松 貴, 七島 篤志, 泉川 公一, 芳賀 英章, 早川 友一郎, 原 耕平, ほか. 腹腔鏡が診断および治療に有効であった腸管囊胞様気腫症の1例. 日本消化器外科学会雑誌. 2003;36:1587-92.
- 17) 松田 佳也, 吉田 博希, 杉本 泰一, 田中 和幸. 緩和治療中に発症した腹腔内遊離ガス像を伴う腸管囊胞様気腫症の1例. 日本臨床外科学会雑誌. 2004;65:3288-92.
- 18) 和田 博雄, 永野 靖彦, 鬼頭 文彦, 福島 恒男. 後腹膜気腫を併存した腸管気腫症の1例. 日本腹部救急医学会雑誌. 2006;26:545-8.
- 19) 有川 俊二, 内田 政史, 魚住 淳, 服部 睦行, 鈴木 弦, 甲斐田 勇人. 頸部食道癌に対する化学放射線療法中に発症した縦隔気腫を伴った腸管気腫症の1例. 臨床放射線. 2009;54:883-7.
- 20) 瓜生 恭章, 馬越 泰生, 百武 威, 長谷川 義展, 浅野 耕吉, 原田 博雅. 肺癌加療中, 腸管囊胞様気腫症を併発した1例. 日本呼吸器学会雑誌. 2010;48:972-5.

CASE REPORT

Pneumatosis Cystoides Intestinalis Associated with Free Air in the Abdomen during Palliative Care for Bone Metastases of Breast Cancer Hiroo Konishi¹⁾, Hiroko Okamura¹⁾, Kanzi Kawai¹⁾ and Yukihiro Sagara¹⁾¹⁾Department of Surgery, Horikawa Hospital

The patient was a 74-year-old woman who developed thoracolumbar vertebral metastases after surgery for bilateral breast cancer and underwent palliative therapy by oral administration of oxycodone. She urgently came to our hospital due to increased back pain and malaise. Abdominal CT showed the presence of free air in the abdominal cavity and an emphysematous lesion. Peritoneal irritation signs were not apparently detected by the initial physical examination. However, the lack of symptoms was thought to be caused by oxycodone. As the possibility of gastrointestinal perforation could not be denied, exploratory laparotomy was performed. Surgery revealed an emphysematous lesion about 10 cm in length at the ileum site of the mesentery but no perforation. Assuming the possibility of metastasis of breast cancer to the small intestine, partial ileal resection was performed. Postoperative histopathology indicated pneumatosis cystoides intestinalis. Recently, pneumatosis cystoides intestinalis has been increasingly reported and there is a certain level of consensus on the diagnosis and treatment. Herein, we report the present case, demonstrating the difficulty in the diagnosis and treatment of pneumatosis cystoides intestinalis associated with free air in the abdomen during palliative therapy, with a review of the literature.

Key Words: pneumatosis cystoides intestinalis, intraabdominal free air, palliative therapy**[Jpn J Gastroenterol Surg. 2014;47(11):726-733]****Reprint requests:** Hiroo Konishi Department of Surgery, Horikawa Hospital
865 Kitafunahashi-cho, Kamigyo-ku, Kyoto, 602-0056 JAPAN**Accepted:** May 28, 2014