症例報告

クローン病による回腸-十二指腸瘻で低栄養を来し、 手術により改善を得た1例

松井 信平¹⁾ 岡林 剛史¹⁾ 長谷川博俊¹⁾ 鶴田 雅士¹⁾
清島 亮¹⁾ 高橋 秀奈¹⁾ 山田 暢¹⁾ 松田 睦史¹⁾
下田 将之²⁾ 北川 雄光¹⁾

¹⁾慶應義塾大学医学部外科

²⁾慶應義塾大学医学部病理診断部

クローン病 (Crohn disease; 以下, CD と略記) は全消化管に狭窄・穿通を生じる疾患であるが, 手術を要する十二指腸病変の発生はまれである。我々は回腸十二指腸瘻による短絡から低栄養に陥った CD 患者に対し手術を施行し, 改善を得た1例を経験したので報告する。症例は52歳の男性で, 20年来的 CD で, 5-ASA, PSL により病状はコントロールされていたが, 半年前より全身倦怠感・食欲不振・下痢を自覚し, 6-MP, IFX の導入を行ったが症状は徐々に増悪した。血清アルブミン値低下も伴うようになり, 小腸短絡形成を疑い, 小腸造影検査および上部消化管内視鏡検査にて回腸十二指腸瘻と診断した。短絡解除目的で瘻孔切除, 瘻孔部閉鎖, 回腸部分切除術, 胃・十二指腸分流, 胃空腸吻合, 空腸瘻留置術を施行した。術後, ADA による維持療法を導入し1年が経過したが, 栄養状態は改善し, CD の再燃なく経過している。

キーワード: クローン病, 回腸十二指腸瘻, 低栄養

はじめに

クローン病 (Crohn disease; 以下, CD と略記) は全消化管に狭窄・穿通を生じる疾患であるが, 回腸十二指腸瘻を来すことはまれである。また, 十二指腸瘻に対する手術は, 十二指腸に非常に大きな欠損が生じ, 縫合不全の危険性の高さから, その再建法には工夫が必要である¹⁾。今回, 我々は回腸十二指腸瘻による短絡から低栄養に陥った CD 患者に対し手術を施行し, 改善を得た1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 52 歳, 男性

主訴: 下痢・腹痛, 体重減少。

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 20 年前に CD と診断された。10 年前に多発結腸狭窄に対し結腸左半切除術を施行されていた。維持療法として 5-ASA 製剤を 2 g/day, PSL を 5 mg/day 使用していたが, 半年前から全身倦怠感・食欲不振・下痢・腹痛症状を認めるようになった。寛解導入を目指し, 6-MP を 2 mg/kg, IFX を 5 mg/kg で投与を開始したが, 徐々に自覚症状は増悪した。また, 血清アルブミン値の低下を伴う低栄養状態を認めるよ

Fig. 1 Abdominal enhanced CT scan. A fistula between the duodenum and the ileum can be observed.

Fig. 2 Gastroscopy shows two fistulae between the duodenum and ileum.

うになり、小腸短絡形成が疑われたため、精査加療目的に入院となった。

入院時現症：身長 178 cm，体重 52 kg，意識清明，脈拍 84 回/分，血圧 90/61 mmHg，体温 35.8°C。眼瞼結膜に貧血なし，眼球結膜に黄染なし。腹部は平坦・軟であったが，左下腹部に圧痛を認めた。

入院時血液検査所見：WBC 9,000/ μ l，RBC 368×10^4 / μ l，Hb 11.3 g/dl，HCT 31.8%，Plt 23.3×10^4 / μ l，TP 4.7 g/dl，Alb 1.5 g/dl，T.Bil 0.7 mg/dl，D.Bil 0.2 mg/dl，I.Bil 0.5 mg/dl，BUN 12.2 mg/dl，Cr 0.54 mg/dl，Na 144.1 mEq/l，K 3.2 mEq/l，Cl 106 mEq/l，LDH 261 U/l，AST 33 U/l，ALT 38 U/l，ALP 354 U/l， γ -GTP 36 U/l，CK 124 U/l，CRP 1.33 mg/dl であった。

腹部 CT 所見：十二指腸下行脚壁および小腸の肥厚を認め，十二指腸下行脚に瘻孔形成を認めた (Fig. 1)。

上部消化管内視鏡検査所見：十二指腸下行脚に 2 個の瘻孔を認めた。瘻孔は円形を呈し，周囲粘膜に浮腫や発赤といった炎症所見などは認めず，多発潰瘍や縦走潰瘍なども認めなかった (Fig. 2)。

小腸造影検査所見：十二指腸下行脚前面の複数の瘻孔から回腸終末への造影剤の流入を確認し，十二指腸と回腸終末部の短絡形成と診断した (Fig. 3a, b)。

入院後経過：入院後，高カロリー輸液（total parenteral nutrition；以下，TPN と略記）にて血清アルブミン値は 2.7 g/dl まで改善した。十二指腸回腸瘻による短絡形成が低栄養状態の根本的な原因と考えられ，

Fig. 3 Oral contrast medium directly flows from the descending part of the duodenum into the end of the ileum. a: normal image, b: magnified image.

Fig. 4 a: Intra-operative photograph. Duodenum and ileum adhered firmly. b: Duodenum and ileum adhered firmly at 30 cm from the end of the ileum. c: Gastrojejunostomy was performed after disconnection of the duodenum.

短絡解除目的で手術を施行する方針とした。

手術所見：回腸は終末部より約 30 cm の部位で十二指腸と癒着し、一塊となっていた。癒着の範囲は五百円玉大に渡り、単純な瘻孔切離は困難であり、病変部の切除を行うためには広範囲な十二指腸壁の切開が必要と考えられた。腹壁と小腸の軽度癒着形成は認められたが、上部空腸や回腸末端部には炎症所見を認めず、その他の腸管同士の癒着も認めなかった。十二指腸壁下行脚前壁を切開し、瘻孔と回腸末端を一括で切除した (Fig. 4a, b)。瘻孔部の回腸は回腸末端より約 30 cm の部位であり、瘻孔部分を含めて、約 20 cm の回腸を部分切除した。十二指腸側は、胃液・食物残渣の通過による十二指腸壁切開部の縫合不全発症の危険性を考慮し、十二指腸壁を縫合閉鎖したうえで、分流手術を選択した。十二指腸口側は球部にて自動縫合機で離断した後、漿膜筋層縫合を行い、断端を埋没閉鎖した。胃空腸吻合術を Billroth-II 法再建にて行ったうえで、十二指腸断端の減圧を図る目的で、空腸瘻チューブを胃空腸吻合部から十二指腸へ挿入し、手術を終了した (Fig. 4c)。

切除標本および病理組織学的検査所見：十二指腸と回腸を通じる瘻孔は 2 か所存在していた (Fig. 5a)。組織学的には、十二指腸壁組織の欠損が見られ、周囲には軽度の炎症細胞浸潤を認めた (Fig. 5b)。また、

Fig. 5 a: Dissected wall of ileum and duodenum. The fistula between them is separated. b: The part of transmural inflammatory of ileum. There is an ulcer formation and transmural focal invasion of inflammatory cells. c: Orifice of fistula at the side of duodenum. There is mild invasion of inflammatory cells around the orifice.

回腸粘膜の一部に小さなびらん・潰瘍形成を認めた。組織学的には、全体的に浮腫性変化およびリンパ管の拡張を認め、UI-III 相当の潰瘍形成とともに、壁全層性に巣状炎症細胞浸潤を認めた (Fig. 5c)。回腸原発の CD に伴う瘻孔病変と考えられ、モントリオール分類, A2, L1, B3 と診断した。

術後経過：術後早期より TPN を再開し、術後第 6 病日より経口摂取を再開した。第 10 病日に空腸瘻チューブより造影剤を注入し、十二指腸壁閉鎖部に縫合不全がないことを確認し、術後第 20 病日に退院した。空腸瘻は術後 3 か月に外来で抜去した。血清アルブミン値は徐々に上昇し、現在は 4.2 g/dl と低栄養状態の改善を得ている。維持療法として ADA を使用し、術後 1 年が経過するが、現在のところ CD 再燃の徴候なく経過している。

考 察

CD は、消化管を全層性に侵す非特異的肉芽腫性炎症性疾患であり、再燃をくり返すと周辺臓器を巻き込み、種々の合併症を生じる。1937 年に CD の十二指腸病変について初めて報告され¹⁾、1950 年から 2015 年 12 月までの PubMed で「Crohn's disease」と「duodenum」をキーワードとして検索（会議録を除く）した結果、1～5%の CD で十二指腸病変を合併するとされている²⁾³⁾。CD の十二指腸病変の病型の 90%が狭窄型とされており、十二指腸における瘻孔形成は非常にまれである。本症例のように瘻孔で小腸を短絡す

Table 1 Reported cases of duodenal fistula or ileal-duodenal fistula due to Crohn disease

No	Author	Year	No. of cases	No. of duodenal fistula cases	No. of ileal duodenal fistula cases
1	Nakagoe ⁶⁾	2003	—	92	1
2	Sugita ⁷⁾	2007	374	17	0
3	Shibasaki ⁸⁾	2009	893	2	0
4	Uchino ⁹⁾	2012	—	12	1

ると、栄養障害を生じ、下痢、体重減少などの症状を呈する。十二指腸病変は内科的治療による改善は困難とされており⁴⁾、診断がつき次第手術の方針とするのが望ましいが、瘻孔周囲の炎症の波及により十二指腸病変の修復には難渋することが多いとされている。

本症例のように低栄養状態のCD患者は、術後敗血症を発症しやすい。瘻孔形成やステロイド治療既往がある場合には、術後敗血症発症率は30%に上るが、術前に低栄養状態を改善することで15%まで下げることができたという報告もある⁵⁾。このようなことを念頭に、本症例では術前TPNを導入し、血清アルブミン値を2.8 g/dlまで回復させ手術を施行した。

また、瘻孔病変についての正確な診断も、治療方針決定において重要である。CDによる十二指腸瘻孔病変は、横行結腸病変や回腸横行結腸吻合部病変との二次的病変として形成されることが多いが、本邦の報告例を見ても本症例のように小腸病変から十二指腸瘻が形成されるのはまれである (Table 1)^{6)~9)}。瘻孔病変が十二指腸原発のCD症例は1~4.5%に過ぎず、そのほとんどが横行結腸や前回手術時の吻合部に責任病変のある瘻孔であった。さらに、小腸病変から十二指腸瘻が形成されたのは2例であった。本症例においては、上部消化管内視鏡と小腸造影を用いて瘻孔部位の正確な診断と流入部の把握を行ったことで手術適応と判断し、術式を決定することができた。さらに、MRIやCTから、瘻孔部位や周囲の解剖学的状況を把握することができ、これらの検査は必須と考えられた。

CD手術は腹腔内所見が定型的でないことが多く、症例ごとの術式判断が必要となることが多く、特に十二指腸瘻を伴う本症例のような手術においては、十二指腸壁の修復、再建方法、吻合部の減圧が重要である。十二指腸瘻病変に対する術式・再建方法としては、単純閉鎖、小腸漿膜面被覆 (serosal patch) 法、空腸-十二指腸吻合がある^{10)~13)}。単純閉鎖は、十二指腸壁欠損部が小さい場合には、長軸方向に縫合閉鎖する。胃内容物が生理的に通過することが利点に挙げられるが、十二指腸壁は血流が乏しく縫合不全や狭窄の危険性がある。小腸漿膜面被覆法は、十二指腸壁の欠損部を縫合することなく空腸で欠損部を被覆し、十二指腸壁全層と空腸の漿膜筋層を1層に縫着する方法である。変形・狭窄を起こさず、手技が簡単で、十二指腸壁欠損部の大きさにかかわらず、施行可能であると考えられるが、小腸漿膜面被覆法においては、縫合不全の危険性は低下するが、腸閉塞の発症やCDの再燃の危険性もあり、その適応には慎重な判断が必要である。空腸-十二指腸吻合は、十二指腸壁の欠損が比較的大きくなった場合に有用であり、吻合部縫合不全の発症も抑えられるが、CDは複数回の手術が必要になることが多く、小腸の短縮化による栄養障害の発症も考慮される。

本症例においては、十二指腸前壁の炎症が強度であり、CD再燃による短絡再形成の危険性を考慮し、壁切除部は一期的に単純閉鎖した。しかし、胃内容通過による縫合不全の危険性を考慮し、十二指腸を球部にて切断し、Billroth-II法にて再建した。これまで、CDの十二指腸瘻病変に対して、本症例のように分流通手術を選択・報告した例はない。十二指腸瘻病変に対する術式は確立していないのが現状であり、個々の症例に対し、柔軟に対応する必要がある。本症例では、十二指腸断端の拡張を避けるため空腸瘻チューブを留置した。結果的に十二指腸の縫合不全の発症などなく退院することができた。

CDによる十二指腸回腸瘻に対する定型的な術式はなく、術前の病態を的確に評価し、術後合併症を想定し手術に備えることが必要であった。

なお、本論文の要旨は第 69 回日本大腸肛門病学会学術集会（2014 年 11 月，横浜）にて発表した。

利益相反：なし

文献

- 1) Gottlieb C, Alpert S. Regional jejunitis. *Am J Roentgenol.* 1937;38:881-3.
- 2) Nugent FW, Roy MA. Duodenal Crohn's disease: an analysis of 89 cases. *Am J Gastroenterol.* 1989;84:249-54.
- 3) Worsey MJ, Hull T, Ryland L, Fazio V. Strictureplasty is an effective option in the operative management of duodenal Crohn's disease. *Dis Colon Rectum.* 1999;42:596-600.
- 4) Yamamoto T, Allan RN, Keighley MR. An audit of gastroduodenal Crohn disease: clinicopathologic features and management. *Scand J Gastroenterol.* 1999;34:1019-24.
- 5) Yamamoto T, Allan RN, Keighley MR. Risk factors for intraabdominal sepsis after surgery in Crohn's disease. *Dis Colon Rectum.* 2000;43:1141-5.
- 6) Nakagoe T, Sawai T, Tsuji T, Nanashima A, Shibasaki S, Yamaguchi H, et al. Successful resection of a duodenal fistula complicated with recurrent Crohn's disease at the site of previous ileocolonic anastomosis: report of a case. *Surg Today.* 2003;33:537-41.
- 7) 杉田 昭, 木村 英明, 小金井 一隆, 大槻 恭子, 二木 了, 福島 恒男, ほか. Crohn 病の胃・十二指腸病変に対する外科治療. *胃と腸.* 2007;42:477-84.
- 8) 柴崎 正幸, 万代 恭嗣, 日下 浩二, 伊地知 正賢, 北村 成大. Crohn 病胃十二指腸病変に対する手術症例の臨床的検討. *日本消化器外科学会雑誌.* 2009;42:1-9.
- 9) Uchino M, Ikeuchi H, Matsuoka H, Matsumoto T, Takesue Y, Tomita N. Clinical features and management of duodenal fistula in patients with Crohn's disease. *Hepatogastroenterology.* 2012;59:171-4.
- 10) Murray JJ, Schoetz DJ Jr, Nugent FW. Surgical management of Crohn's disease involving the duodenum. *Am J Surg.* 1984;147:58-65.
- 11) Fichera A, Hurst RD, Michelassi F. Current methods of bowel-sparing surgery in Crohn's disease. *Adv Surg.* 2003;37:231-51.
- 12) Akbulut S, Yavuz B, Köseoğlu T. Crohn's disease with isolated esophagus and gastric involvement. *Turk J Gastroenterol.* 2004;15:196-200.
- 13) Ross TM, Fazio VW, Farmer RG. Long-term results of surgical treatment for Crohn's disease of the duodenum. *Ann Surg.* 1983;197:399-406.

CASE REPORT

Ileal Duodenal Fistula with Malnutrition Caused by Crohn Disease, Improved by Operation

Shimpei Matsui¹⁾, Koji Okabayashi¹⁾, Hiroto Hasegawa¹⁾, Masashi Tsuruta¹⁾,
Ryo Seishima¹⁾, Hidena Takahashi¹⁾, Toru Yamada¹⁾, Mutsuhito Matsuda¹⁾,
Masayuki Shimoda²⁾ and Yuko Kitagawa¹⁾

¹⁾Department of Surgery, Keio University School of Medicine

²⁾Department of Pathology, Keio University School of Medicine

Crohn disease can develop stricture and perforation in any part of the alimentary tract. However, duodenal Crohn disease is rarely observed and often difficult to treat. A 52-year-old man with Crohn disease presented with general fatigue, appetite loss, abdominal pain and diarrhea. Although several drugs (steroids, 5-ASA, immuno-modulator, anti-TNF- α antibody) were administrated considering recurrence of Crohn disease, his manifestations did not disappear and his nutritional condition was also worsened. Several examinations revealed his malnutrition due to bowel short-circuiting by duodenal fistula to terminal ileum adding to refractory Crohn disease. To remove the short-circuiting, operation was performed. After removing the short-circuiting and closing the fistula, ileal partial resection was performed. Duodenum was diverted, then Billroth-II gastrojejunostomy and jejunostomy was carried out. After the operation, he achieved maintenance therapy using anti-TNF- α antibody. Consequently, we have succeeded in improvement of nutritional status and have not identified any recurrence of Crohn disease for postoperative eight months.

Key Words: Crohn disease, ileal-duodenal fistula, malnutrition

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2016;49(11):1157-1163]

Reprint requests: Koji Okabayashi Department of Surgery, Keio University School of Medicine
35 Shinano-machi, Shinjuku-ku, 160-0016 JAPAN

Accepted: June 22, 2016