症 例

Ladd手術を行い30年に及ぶ食思不振が改善した腸回転異常の1例

永寿総合病院外科

安 藤 知 史 岡 泰 州 半 田 寛 愛 甲 聡

われわれは、30年間神経性食思不振症と診断されていた成人腸回転異常症の女性が、絞扼性腸閉塞を発症し、緊急手術施行後に腹部症状、栄養状態が改善した症例を経験した。症例は48歳、女性。思春期から食思不振、腹部膨満、便秘等の腹部症状を認め、病悩期中に神経性食思不振症と診断されていた。今回、慢性的な腹痛が増悪し、入院加療を受けていた近医より当院へ転院となり絞扼性腸閉塞の診断で緊急手術を行った。開腹すると、回腸から上行結腸までの軸捻転による捻転した腸管の虚血壊死および回腸の穿孔を認め、回盲部切除術を行った。さらに、Ladd靱帯による十二指腸狭窄を認めたため、Ladd靱帯を切除し、十二指腸狭窄を解除した。術後18カ月経過しており、栄養状態の改善および体重増加を認めている。本症例は、思春期より神経性食思不振症と診断されていたが、実際は腸回転異常症に起因する食思不振症であった稀な症例であると考えられる。

索引用語：腸回転異常症、神経性食思不振症、絞扼性腸閉塞

はじめに

腸回転異常症は、胎生期の腸管の回転異常や固定不良に起因する疾患である。多くは新生児期に腸管軸捻として発症し、腸管壊死や穿孔のように重篤化する場合もある¹⁾²⁾。それに対して成人での発症例は稀であり、そのほとんどが小児期には無症状で経過し、成人になってから画像検査や手術で偶発的に発見される³⁾⁴⁾。今回われわれは、思春期より30年もの間、慢性的な食欲低下や腹部膨満を認め、神経性食思不振症として心療内科に通院していた症例で、絞扼性腸閉塞に対する手術時にLadd手術を加えて行い、慢性的症状の改善を得た1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：48歳、女性。

主訴：腹部膨満。

既往歴：神経性食思不振症（心療内科に通院中）。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：腹部膨満を主訴に近医を受診した。CTに

て小腸拡張を認めたため腸閉塞の診断で緊急入院となった。イレウス管挿入を試みたが十二指腸下行脚から肛門側にチューブが進まず、ドレナージ困難であった。その後腹部症状が増悪傾向であり、また、CT上は腸回転異常の可能性が疑われたため、前医入院5日後に精査加療目的に当院に転院となった。

入院時現症：身長163.0cm、体重31.3kg、BMI 11.78、体温36.9℃、血圧94/57mmHg、脈拍82回/分、腹部膨満で軟、下腹部の圧痛は軽度で、自発痛が強かった。

血液検査所見：WBC 18,300/ μ l、CRP 33.3mg/dlと上昇を認めた。BUN 63mg/dl、Cr 2.16mg/dlと著明な脱水を認めた。

胸腹部CT (Fig. 1)：腸管外にfree airを認め、小腸は全体に拡張していた。骨盤入口部高位で正中のやや左側にclosed loopの所見を認め、閉塞起点と考えられた。骨盤内には血性腹水を認めた。

以上から、絞扼性腸閉塞による消化管穿孔と診断し、緊急手術の方針とした。

術中所見：仰臥位にて開腹手術を行った。開腹し、650mlの血性腹水を吸引した。200cmにわたる回腸および盲腸から上行結腸にかけて腸間膜の軸捻による虚血所見があり、回腸末端に穿孔を疑う所見を認めた。軸捻を解除したところ、回盲部から上行結腸近位は後

2019年11月11日受付 2019年11月25日採用

〈所属施設住所〉

〒110-8645 東京都台東区東上野2-23-16

Fig. 1 腹部CT所見：a：下腹部正中の高さに腸管のclosed loopの所見を認める（矢印）。b：冠状断にて同様の所見を認める（矢印）。c：腸管外にfree air（矢頭）を認める。

Fig. 2 術中所見模式図：a：回盲部が軸捻転し、絞扼した腸管は壊死を認めた（矢頭）。十二指腸と上行結腸はLadd靱帯（矢印）により癒着していた。b：回盲部を切除し、回腸と横行結腸を端側吻合にて再建した（矢印）。加えて、Ladd靱帯を切離した。

腹膜に固定されていなかった。一方、上行結腸遠位は後腹膜と強固に癒着し、十二指腸前面から上行結腸にかけて肥厚した線維性腹膜(Ladd靱帯)の形成を認め、口側の十二指腸は著明に拡張していた。Ladd靱帯が今回の絞扼性腸閉塞の直接の原因ではなかったが、慢

性的な食思不振の原因となっている可能性を考え、Ladd靱帯を切離し十二指腸の圧迫を解除した。壊死腸管については、癒着がない上行結腸近位の正常腸管に切離線を決め、虚血腸管を切除した。残存上行結腸は強固で授動困難であったため、小腸断端と横行結腸

Fig. 3 術後の体重変化：体重の増加傾向を認めた。

を端側吻合にて再建した (Fig. 2)。最終的に150cmの小腸を温存することができた。

病理所見：切除腸管に明らかな悪性所見を認めなかった。

術後経過：術後は人工呼吸器管理を継続し、敗血症やDICの治療を行った。4PODに抜管し、8PODには食事を開始した。特に短腸症候群の症状を発症することなく、28PODに退院となった。現在外来にて18カ月間経過観察中であるが、術前と比較して食事摂取量が著明に改善され、体重は徐々に増加傾向となった (Fig. 3)。また、血液検査上においても栄養状態の改善を示唆する所見を認めた (Fig. 4)。

考 察

正常発生において中腸は胎生期に上腸間膜動脈を軸として反時計回りに270度回転した後腹膜に固定されるが、腸回転異常症では中腸の回転異常や後腹膜への固定不全が起こることで腸管壊死や腸管軸捻転を発症する¹⁾²⁾。腸回転異常症の約90%は新生児期に発症し、発症率は全新生児の0.2-0.5%程度と報告されているが、成人での発症例は稀である³⁾⁴⁾。その中でも腹部膨満や食思不振といった慢性的な症状を呈することは少なく、そのような場合には本症例同様に思春期から心療内科に通院しているケースも報告されている⁵⁾。

腸回転異常症はincomplete rotation型とnon-rotation型に分類され、incomplete rotation型は180度で中腸が回転を停止することで、近位中腸は上腸間膜動脈の右側で後腹膜に固定される一方、上行結腸は十二指腸前面を被覆する線維性結合組織であるLadd靱帯

により後腹膜に付着しているものの、固定されずに上腸間膜動脈の前面に存在する。それに対してnon-rotation型は90度で回転が停止することで、近位中腸が上腸間膜動脈の右側に、上行結腸が左側に付着しており、十二指腸と上行結腸はLadd靱帯で固着しているがどちらも後腹膜に固定されていない状態である⁶⁾。両者の判別にはCT所見が有用で、上腸間膜静脈が上腸間膜動脈の左側に位置するSMV rotation signがnon-rotation型に特徴的であり、incomplete rotation型にその所見は認められないことが多い⁷⁾。本邦の31症例をまとめたこの報告ではnon-rotation型が最も多く51.6%であった。本症例では、十二指腸から肛門側の小腸は上腸間膜動脈の右側に、上行結腸は左側に位置していた。また、CTでSMV rotation signを認めていることから (Fig. 5)、non-rotation型の腸回転異常症であったと考える。

無症状の腸回転異常症は経過観察されるが、本症例のように腸軸捻転による腸閉塞や腸管壊死、穿孔をきたすような場合には外科的手術が必要になる。腸回転異常に対してはWilliam Edwards Laddにより1936年に考案されたLadd手術が行われる⁸⁾。この術式では、腸管の癒着剥離やLadd靱帯の切離を行い、腸間膜根を伸展させることで捻転が生じないように腸管を配置する。また、腸回転異常に虫垂炎を合併した場合には診断が困難であるとの報告があり、予防的に虫垂切除術を行うのが一般的である⁹⁾。本症例では、術中所見からLadd靱帯が絞扼性腸閉塞の直接の原因とはなっていないが、絞扼した腸管の切除に加えてLadd

Fig. 4 術後の血液検査の推移：栄養状態の指標である5項目すべてにおいて改善傾向を認めた。灰色は正常範囲を表す。

手術を行うことで30年もの間悩まされてきた食欲不振と繰り返す腹部膨満が著明に改善された。術前もしくは術中に偶発的に診断された場合のLadd手術の要否については明確なエビデンスがないのが現状であるが¹⁰⁾、本症例のように食欲不振や腹部膨満の症状を有している場合はLadd手術を行う方がよいと考える。今後は症例数を蓄積し、無症状の腸回転異常症に対しての予防的手術の有効性について検討する必要がある。

厚生労働省によれば神経性食思不振症の診断基準には、1. 標準体重の-20%以上のりい瘦、2. 不食や大食、隠れ食いなどの食行動の異常、3. 体重や体形に対する歪んだ認識、4. 発症年齢30歳以下、5. (女性の場合) 無月経、6. りい瘦の原因となる器質的疾患がない、の6項目がある。しかしながら、食欲不振の原因となる疾患は多岐にわたることや発症年齢が若年であることから、器質的疾患の除外はしばしば不十分となることが多い。腸回転異常症の診断にはCTや

Fig. 5 3D-CTによる血管構築画像：上腸間膜静脈（矢印）が上腸間膜動脈（矢頭）の左側にSMV rotation signを認めた。

消化管造影検査が有用であるが、本症例においても器質的疾患の除外目的にこれらの画像検査を早期に行っていたれば、腸回転異常症に対して待機的な腹腔鏡手術による根治術を行うことができ、今回のような絞扼性腸閉塞を予防することができたのではないかと考える。

結 語

われわれは、神経性食思不振症と診断され30年間食欲不振と腹部膨満に悩まされていた症例が絞扼性腸閉塞を発症し、緊急手術中に腸回転異常症と診断しLadd手術を行ったところ、上記症状が著明に改善した症例を経験した。偶発的に診断された腸回転異常症に対しては術中にLadd手術を行うことを検討するべきであると考えられた。

利益相反：なし

文 献

- 1) Gamblin TC, Stephens RE, Rothwell M, et al :

Adult malrotation : a case report and review of the literature. *Curr Surg* 2003 ; 60 : 517-520

- 2) Kotobi H, Tan V, Parc Y, et al : Total midgut volvulus in adults with intestinal malrotation. Report of eleven patients. *J Visc Surg* 2017 ; 154 : 175-183
- 3) Bhatia S, Jain S, Gowda NS, et al : Malrotation of the gut in adults : an often forgotten entity. *Cureus* 2018 ; 10 : 2313
- 4) Emanuwa OF, Ayantunde AA, Davies TW, et al : Midgut malrotation first presenting as acute bowel obstruction in adulthood : a case report and literature review. *World J Emerg Surg* 2011 ; 6 : 22
- 5) 楠田慎一, 福島正之, 北原光太郎 : 幼少時から腹部症状をみとめた中腸軸捻転症の1例. *日腹部救急医学会誌* 2007 ; 27 : 91-93
- 6) Tackett JJ, Muise ED, Cowies RA, et al : Malrotation : current strategies navigating the radiologic diagnosis of a surgical emergency. *World J Radiol* 2014 ; 6 : 730-736
- 7) 栗田大資, 空野泰司, 松原秀雄他 : 腹腔鏡下Ladd手術を施行した成人腸回転異常症に伴う中腸軸捻の1例. *日臨外会誌* 2017 ; 78 : 742-747
- 8) Ladd WE : Surgical disease of the alimentary tract in infants. *N Engl J Med* 1936 ; 215 : 705-708
- 9) 加藤憲治, 櫻井洋至, 松田信介他 : 左下腹部痛で発症した腸回転異常を伴った急性虫垂炎の1例. *日臨外会誌* 1996 ; 57 : 2494-2498
- 10) 島貫公義, 千葉 惇, 板橋邦宏他 : 成人腸無回転症に伴った盲腸癌の1例. *日臨外会誌* 1988 ; 49 : 2357-2362

A CASE OF ANOREXIA CURED BY LADD OPERATION FOR INTESTINAL MALROTATION DIAGNOSED DURING SURGERY

Tomofumi ANDO, Taishu OKA, Kan HANDA and Satoshi AIKO

Department of Surgery, Eiju General Hospital

A 48-year-old woman had been diagnosed with anorexia nervosa, and had been suffering from appetite loss, abdominal distention, and constipation for 30 years. She had been receiving psychosomatic treatment. This time, she suddenly developed strangulation ileus and underwent emergency surgery. During the procedure, axis rotation from ileum to cecum was observed, with intestinal necrosis and perforation of terminal ileum. Intestinal malrotation and duodenal stenosis due to formation of Ladd's bands were also observed. In addition to ileocecal resection, the Ladd procedure was performed to correct the stenosis. At the 18-month follow-up post-surgery, her chronic complaints disappeared and her nutritional status had markedly improved. This case was valuable in that chronic appetite loss and abdominal distention that had been diagnosed as anorexia nervosa were caused by intestinal malrotation in actuality.

Key words : intestinal malrotation, anorexia nervosa, strangulation ileus