症 例

妊娠中に再発したLadd手術後中腸軸捻の1例

宇治徳洲会病院外科¹⁾, 京都府立医科大学小児外科学教室²⁾, 宇治徳洲会病院小児科³⁾, 同 産婦人科⁴⁾

長 野 心 太¹⁾²⁾ 久保田 良 浩¹⁾ 高 岸 智 子¹⁾

篠 塚 淳³⁾ 青 木 昭 和⁴⁾

妊娠27週5日の32歳, 女性. 心窩部痛と嘔吐を主訴に救急搬送された. 腹部単純CTで中腸軸捻が疑われたため新生児科医および産科医の立ち会いのもと, 緊急手術を施行した. Treitz靱帯の形成はなく, 上腸間膜動脈を中心として小腸・盲腸・上行結腸が時計回りに360°軸捻転していたため, 腸回転異常症に伴う中腸軸捻と診断し, 捻転を解除した. 腸管の虚血性変化は軽度で腸管切除は要さなかった. 術後は一過性に子宮収縮を認めたものの, 経過良好で術後9日目に退院となった. 妊娠中に生じる中腸軸捻の報告は非常に少なく, 国内では2例目である. 母児ともに予後良好に治療しえたので報告する.

索引用語: 妊娠, 中腸軸捻, 再発

緒 言

妊娠中に発症する中腸軸捻は稀な疾患であり, 母児ともに致死的な病態となりうる. 今回, 腹部単純CTにより中腸軸捻と診断し, 新生児科医と産科医の協力のもと手術により治療しえた症例を経験したので報告する.

症 例

症例: 32歳, 女性. 1G1P, 妊娠27週5日.

主訴: 心窩部痛, 嘔吐.

現病歴: 搬入8時間前より心窩部に間欠的な痛みを自覚し, 一旦は自然軽快したものの, 搬送前に再度増強して自制困難となり, 食物残渣様の嘔吐を伴うようになったため救急要請された. 搬入時には問診もとれないほど腹痛は持続しており, 自制困難な状態であった. 他院での腹部手術歴があり, 家族の話では「小腸と大腸が絡まっていた」とのことであったが詳細は不明であった. 最終飲食は搬入12時間前.

既往歴: 腹腔鏡下腸回転異常症手術 (詳細不明, 4年前).

家族歴: 特記事項なし.

周産期: 異常所見認めず.

現症: 身長154cm, 体重48.9kg. 血圧104/65mmHg, 脈拍83回/分, 呼吸数24回/分, 体温36.5℃. ベッド上で側臥位になり, 苦悶表情あり. 眼瞼結膜; 貧血なし, 眼球結膜; 黄染なし. 呼吸音; 清明, 左右差なし. 心音; 整, 心雑音なし. 腹部; 膨隆・軟, 心窩部に圧痛あり, 腸蠕動音減弱, 腹膜刺激症状なし, 臍上下に5cmの手術痕を認める.

その他, 四肢体幹に異常所見なし.

血液生化学検査: WBC 8,300/mm³, Hb 10.3g/dl, Hct 31.3%, Plt 26.5×10³/mm³, AST 20IU/L, ALT 14IU/L, γ -GTP 5IU/L, ALP 202IU/L, CPK 44U/L, TP 6.5g/dl, Alb 3.1g/dl, T-bil 0.58mg/dl, AMY 178IU/L, p-AMY 44IU/L, CRP 0.08mg/dl, Na 138mEq/L, K 3.1mEq/L, Cl 107mEq/L.

動脈血ガス: pH 7.453, PaO₂ 116mmHg, PaCO₂ 23.4mmHg, HCO₃ 16.1mmol/L, BE -6.3mmol/L.

胸部X線写真: 異常所見認めず.

腹部単純CT (Fig. 1): 腸間膜に上腸間膜動脈を軸としたwhirl pool signを認める. また, 下腹部に子宮・胎児を認め, 腹腔内臓器は右上腹部へ圧排されている.

以上の経過より, 術後の癒着性腸閉塞ではなく中腸軸捻の再発と診断し, 緊急開腹術を施行した. 全身麻酔とすることで早産の可能性があったため, 新生児科医と産科医に立ち合いを依頼し, また麻酔科医と産科医が協議し, 術前からリトドリン塩酸塩(ウテメリン®)

2020年1月8日受付 2020年4月16日採用

〈所属施設住所〉

〒611-0041 宇治市榎島町石橋145

Fig. 1 腹部CT：腹水，free air，腸管拡張像を認めない．腸間膜に上腸間膜動脈を軸とした whirl pool sign を認める (→)．下腹部に子宮・胎児 (*) を認め，腹腔内臓臓器は右上腹部へ圧排されている．

Fig. 2 術中写真

- a 時計回りに360°捻転．
- b Ladd手術を施行し，non-rotation型で還納．

$\frac{a}{b}$

を用いて子宮収縮を抑制した．

手術所見 (Fig. 2)：全身麻酔下で10cmの上腹部正中切開で開腹した．Treitz靱帯は形成されておらず，拡張した子宮により全小腸と右側結腸が右上腹部に偏在して上腸間膜動脈基部を中心として時計回りに360°捻転していた．捻転を解除後，空腸と上行結腸の間の線維組織を認めた．これはLadd術後再発による癒着組織と思われ，十分に剥離し，可能な限り小腸間膜と結腸間膜を広く分離した．

術中は新生児科医に手術室に待機してもらい，産科医の立ち会いのもと胎児心拍などを適宜確認してもらった．術後は一過性に子宮収縮を認めたものの，母児ともに経過は良好で，術後9日目に退院となった．退院4カ月後，予定通りに健常児を出産した．

考 察

腸回転異常症は，胎生期において上腸間膜動脈を軸とする中腸の反時計回りの270°回転および固定に異常が生じたものである．腸回転異常症には様々な分類があるが，Wangら¹⁾は回転が90°で停止したnon-rotation type，回転が180°で停止したmalrotation type，逆回転したreversed rotation type，paraduodenal hernia typeの4つの病型に分類した．この分類に基づくと本症はnon-rotation typeであったと推察され，この病態では十二指腸と上行結腸が近接し，その結果狭小化した腸間膜により形成されたpedicleに小腸・盲腸・上行結腸が腹腔内にぶら下がる状態となっている．

腸回転異常症の発生頻度は0.2-0.5%で¹⁾，85%は生後2週間以内に中腸軸捻として発症する一方で，すべ

Table 1 妊娠中に発症した中腸軸捻の報告例

No.	報告年, 報告者	週数	術式	母体	胎児	
1	1957, Moore, et al ⁹⁾	3 カ月	十二指腸空腸吻合	生存	生存	
2	1968, 永井ら ¹⁰⁾	6 カ月	Ladd	生存	生存	国内 1 例目
3	1981, Stavorovsky, et al ¹¹⁾	28週	全小腸+結腸右半切除	生存	生存	
4	1981, Van Wingerden, et al ¹²⁾	22週	Ladd	生存	生存	
5	1993, Matthews, et al ¹³⁾	23週	全小腸+結腸右半切除	生存 (TPN)	胎児死亡	診断遅れ
6	1997, Kusnetzoff, et al ¹⁴⁾	35週	大量切除+空腸瘻	10カ月後死亡 (TPN)	死産	診断遅れ
7	1998, Ventura-Braswell, et al ¹⁵⁾	37週	小腸大量切除	生存	生存	
8	2010, Gaikwad, et al ¹⁶⁾	33週	全小腸+結腸右半切除	死亡	胎児死亡	診断遅れ
9	2011, Shui, et al ⁷⁾	35週	捻転解除	生存	生存	静脈血栓
10	2011, Siwatch, et al ¹⁷⁾	20週	-	生存	生存	内視鏡治療
11	2013, Kouki, et al ¹⁸⁾	14週	記載なし	生存	生存	MRIで診断
12	2014, Hwang, et al ¹⁹⁾	38週	結腸右半切除	死亡 (死因不明)	生存	
13	2017, Esterson, et al ⁶⁾	33週	Ladd	生存	生存	
14	2017, Gao Antunes, et al ²⁰⁾	27週	Ladd	生存	生存	
15	自験例	27週	Ladd	生存	生存	再発症例

てが発症するわけではなく成人まで無症状で経過する例も多く存在することから、本来の有病率は定かではない²⁾。成人報告例は全発症例の0.2~0.5%³⁾とされ、腸閉塞症状で発症することが多い。すなわち、①Ladd靱帯による十二指腸の圧迫、②捻転、③内ヘルニア、④十二指腸空腸移行部の癒着による閉塞などの要因で発症するが、その症状は嘔気・嘔吐、腹部膨満感、腹痛などが主であり、妊娠中であれば妊娠悪阻や切迫流産などの非特異的な症状との鑑別を要するため診断は非常に難しい。

妊娠を機に腸閉塞を発症する症例は非常に稀で、癒着が70%と最多で、次いで捻転 (25%) となっている。これは非妊婦の腸閉塞における捻転の占める割合 (3~5%) に比較すると10倍程度の頻度である⁴⁾⁵⁾。妊娠中の腸捻転の原因として、妊娠と腸回転異常症は独立した危険因子とされており⁶⁾、子宮が急速に増大し腹腔内臓器となる16-20週、胎児が骨盤内に移動する32-36週、子宮が急速に正常サイズに戻る産褥期に起こりやすいとされている⁷⁾。

軸捻転は消化管のいずれの部位でも生じうるが、胃・十二指腸・小腸・盲腸・上行結腸・横行結腸・S状結腸の中で最も多い部位はS状結腸であり25%~44%を占める⁵⁾。軸捻転が発生するためには誘因が必要であり、支点として癒着や腸間膜根部の狭小、索状物など、作用力として嘔吐・咳嗽・外傷・妊娠分娩・跳躍などが挙げられている⁸⁾。妊娠後期では子宮の増大に伴い、盲腸が骨盤から右上腹部に押し出されることで小腸間膜と上腸間膜静脈が回転する⁷⁾といわれており、本症

の発症機序も同様で、支点が上腸間膜動脈のpedicle、作用力が子宮の増大であったと考えられた。

軸捻転の中でも本症のような中腸軸捻は最も予後不良で、母体および胎児ともに死亡率や合併症発生率が非常に高い。PubMedで「Midgut volvulus」「Pregnancy」および医学中央雑誌で「中腸軸捻転」「妊娠」で検索し、出産後あるいは帝王切開後の発症と部分的な捻転 (小腸軸捻など) は除外すると、1957年にMooreら⁹⁾が発表して以来、2018年までに14例の報告を認めた (Table 1)^{6)7)9)~20)}。国内では永井ら¹⁰⁾が1968年に発表して以来の2例目であった。全14例のうち手術例が13例を占め、近年ではMRIでの診断や、内視鏡的捻転整復を試みるような、時間的に余裕のある比較的軽症な症例も認めた。手術症例13例のうち、腸管虚血を伴わずバイパス術が行われた1例、Ladd手術が施行された4例、捻転解除術のみの1例は母体および胎児ともに予後良好であった。一方で、腸管虚血のため腸管切除が施行された6例の予後は著しく不良であり、母体の死亡と胎児死亡がそれぞれ3例と半数が死亡していた。これらは妊婦ゆえに診断が遅れたことが大きく関与していると考察されていた。

また、本症のようなLadd手術後の再捻転は、小久保ら²¹⁾によると国内で14例報告される程度であり頻度は非常に低い。本症に関しては初回手術が腹腔鏡手術であったことも少なからず関係していると考えられる。腸回転異常症に対する標準術式であるLadd手術は、①捻転の解除、②Ladd靱帯の切離、③小腸を右方に結腸を左方に腸間膜を末梢まで広げ、上腸間膜動

静脈への線維性圧迫を根部まで解除し腸間膜を開大する手術であり、④Ladd手術後の腸管固定は術後に癒着が生じるため不要とされる。本症では低侵襲である腹腔鏡下に施行したために③の操作が十分になされていなかった可能性、および低侵襲であるために術後の癒着が不十分であった可能性がある。同様に、腹腔鏡下にLadd手術を施行する際には腸管固定の追加の必要性を検討すべきとする報告²²⁾もある。妊娠に伴い腹腔内環境の変化で再発することも考慮し、十分に長期予後を説明しておく必要があると考える。

結 語

妊娠中に発症した中腸軸捻を経験した。腸回転異常症を有する妊婦では、子宮の増大を契機として軸捻転を生じやすく、発症しても非特異的の症状ゆえに診断が遅れるため、母体および胎児ともに死亡率は高い。今回の症例では早期に治療することで腸管切除することなく、母児ともに予後良好であった。

なお、本論文の要旨は第80回日本臨床外科学会総会(2018年11月、東京)で示説発表した。

利益相反：なし

文 献

- 1) Wang CA, Welch CE : Anomalies of intestinal rotation in adolescents and adults. *Surgery* 1963 ; 54 : 839–855
- 2) Nakajima Y, Sakata H, Yamaguchi T, et al : Successful treatment of a 14-year-old patient with intestinal malrotation with laparoscopic Ladd procedure : case report and literature review. *World J Emerg Surg* 2013 ; 8 : 19
- 3) 嵩原一裕, 浦尾正彦, 宮野省三他 : 成人腸回転異常症に対する術式の検討. *日外科系連会誌* 2016 ; 41 : 15–21
- 4) Webster P, Bailey M, Wilson J, et al : Small bowel obstruction in pregnancy is a complex surgical problem with a high risk of fetal loss. *Ann R Coll Surg Engl* 2015 ; 97 : 339–344
- 5) Cong Q, Li X, Ye X, et al : Small bowel volvulus in mid and late pregnancy : can early diagnosis be established to avoid catastrophic outcomes? *Int J Clin Exp Med* 2014 ; 7 : 4538–4543
- 6) Esterson YB, Villani R, Dela Cruz RA, et al : Small bowel volvulus in pregnancy with associated superior mesenteric artery occlusion. *Clin Imaging* 2017 ; 42 : 228–231
- 7) Shui LH, Rafi J, Corder A, et al : Mid-gut volvulus and mesenteric vessel thrombosis in pregnancy : case report and literature review. *Arch Gynecol Obstet* 2011 ; 283 (Suppl 1) : 39–43
- 8) 畑川幸生, 丸田守人, 坂本賢也他 : 盲腸軸捻転症の1治験例—本邦報告111例の検討—. *日臨外会誌* 1988 ; 49 : 870–876
- 9) Moore TC : Vomiting during pregnancy due to midgut volvulus with duodenal obstruction. *Am J Obstet Gynecol* 1957 ; 74 : 1356–1360
- 10) 永井良治, 角岡秀彦, 片岡 誠他 : 妊娠時に発病した軸捻転を伴った腸回転異常の1例. *ドクターサロン* 1968 ; 12 : 490–496
- 11) Stavorovsky M, Iellin A, David M, et al : Midgut volvulus with secondary thrombosis of superior mesenteric vessels in a pregnant woman. *Surgery* 1977 ; 81 : 353–356
- 12) Van Wingerden GI, Dons RF : Complete duodenal obstruction during pregnancy, with intestinal nonrotation and painless midgut volvulus. *J Reprod Med* 1981 ; 26 : 265–267
- 13) Matthews CM, Soper DE : Midgut volvulus associated with pregnancy. *South Med J* 1993 ; 86 : 819–820
- 14) Kusnetzoff DJ, Barata AD, Casalnuovo C, et al : Massive midgut volvulus during pregnancy. *J Obstet Gynaecol* 1997 ; 17 : 583
- 15) Ventura-Braswell AM, Satin AJ, Higby K : Delayed diagnosis of bowel infarction secondary to maternal midgut volvulus at term. *Obstet Gynecol* 1998 ; 91 : 808–810
- 16) Gaikwad A, Ghongade D, Kittad P : Fatal midgut volvulus : a rare cause of gestational intestinal obstruction. *Abdom Imaging* 2010 ; 35 : 288–290
- 17) Siwatch S, Noor MT, Dutta U, et al : Endoscopic management of a pregnant lady with duodenal obstruction due to malrotation with midgut volvulus. *Trop Gastroenterol* 2011 ; 32 : 339–341
- 18) Kouki S, Fares A, Alard S : MRI whirlpool sign in midgut volvulus with malrotation in pregnancy. *JBR-BTR* 2013 ; 96 : 360–361
- 19) Hwang SM, Na YS, Cho Y, et al : Midgut volvu-

- lus as a complication of intestinal malrotation in a term pregnancy. Korean J Anesthesiol 2014 ; 67 (Suppl) : S98 – 99
- 20) Gao Antunes AS, Peixe B, Guerreiro H : Midgut Volvulus as a Complication of Intestinal Malrotation in Pregnancy. ACG Case Rep J 2017 ; 4 : e9
- 21) 小久保健太郎, 林 昌俊, 柄井航也他 : Ladd手術後16年目に中腸軸捻再発をきたした腸回転異常症の1例. 日臨外会誌 2013 ; 74 : 1533 – 1537
- 22) 栗田大資, 杵野泰司, 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

A CASE OF MIDGUT VOLVULUS RECURRED AFTER A LADD OPERATION DURING PREGNANCY

Shinta NAGANO¹⁾²⁾, Yoshihiro KUBOTA¹⁾, Tomoko TAKAGISHI¹⁾,
Jun SHINOZUKA³⁾ and Showa AOKI⁴⁾

Department of Surgery, Uji Tokushukai Medical Center¹⁾

Department of Pediatric Surgery, Kyoto Prefectural University of Medicine²⁾

Departments of Pediatrics³⁾ and Obstetrics and Gynecology⁴⁾, Uji Tokushukai Medical Center

A 32-year-old woman at 27 weeks and 5 days of pregnancy was brought into our hospital by ambulance because of epigastralgia and vomiting. Since midgut volvulus was suspected by an abdominal pain CT scan, we performed an emergency operation in the presence of a neonatologist and a gynecologist. We identified that the Treitz ligament had not been formed and that the small intestine, cecum, and ascending colon were twisted clockwise by 360 degrees around the superior mesenteric artery. We diagnosed the case as midgut volvulus associated with malrotation and reduced the volvulus. Ischemic change of the intestine was so mild that bowel resection was unnecessary. Although a temporary uterine contraction was noted, her postoperative course was uneventful and she was discharged from our hospital on the 9th postoperative day. Midgut volvulus occurring during pregnancy has rarely been reported and this case is the second report in Japan. We present here that both mother and her baby were successfully treated with favorable prognosis.

Key words : pregnancy, midgut volvulus, recurrence