症例報告

閉鎖孔ヘルニアにより腸閉塞を発症した
多発性嚢胞腎透析患者の剖検例

太田 英里子^{*1} 鈴木 一恵^{*1} 澁谷 あすか^{*1} 勝部 真衣^{*1}
 中村 裕也^{*1} 齊藤 博^{*1} 川野輪 香織^{*2} 廣岡 信一^{*2}
 船田 信顕^{*2} 安藤 稔^{*1}
 東京都立駒込病院腎臓内科^{*1} 同病理科^{*2}

key words: 多発性嚢胞腎, 腸閉塞, 下肢痛, 敗血症

〈要旨〉

症例は多発性嚢胞腎による慢性腎不全のため14年間血液透析療法を受けていた82歳女性である。散歩中に右下肢痛が出現し、その夜から臥床がちとなり、翌日から悪心嘔吐症状がみられ、2日後に当院を受診した。上部消化管内視鏡にて高度逆流性食道炎と診断され、左下葉肺炎を併発しており、同日緊急入院した。絶食、プロトンポンプ阻害薬投与、抗生物質投与にて肺炎、消化器症状は一時改善したが、第7病日に経口摂取を開始したところ、翌第8病日より腹痛が出現し、小腸イレウスが確認された。イレウス管を挿入して保存的治療を行ったが、第10病日より発熱・血圧低下がみられ、第11病日敗血症で死亡した。剖検にて回盲部より30cm口側の回腸が右閉鎖孔に嵌頓しており、腸閉塞の原因は閉鎖孔ヘルニアであったと判明した。一般に閉鎖孔ヘルニアは腸閉塞の原因としては全体の0.5%と比較的まれな疾患であり、内科医にとっての認知度は低いと思われる。剖検所見で嵌頓した腸管粘膜にはびらん、潰瘍、壊死を認めなかったが、腸管壊死に至る前の腸閉塞でも本例のように高齢で免疫能の低下した患者では急激な悪化から不幸な転帰をとることがある。透析患者のイレウスの鑑別診断の一つとして、本疾患に留意する必要があるとともに本疾患では開腹手術の時期を逃さないことが重要であると考え、ここに報告する。

Autopsy of a hemodialysis patient with polycystic kidney disease complicated by obturator hernia

Eriko Ohta^{*1}, Hito Suzuki^{*1}, Asuka Shibuya^{*1}, Mai Katsube^{*1}, Yuya Nakamura^{*1},
 Hiroshi Saito^{*1}, Kaori Kawanowa^{*2}, Shinichi Hirooka^{*2}, Nobuaki Funata^{*2}, Minoru Ando^{*1}
 Department of Nephrology^{*1}, and Pathology^{*2}, Tokyo Metropolitan Komagome Hospital

An 82-year-old female with autosomal dominant polycystic kidney disease (ADPKD) who had received hemodialysis therapy for 14 years is reported. She experienced pain in the right leg on walking and eventually became bed-ridden. She consulted our emergency room for severe nausea and epigastralgia and vomitted blood. Since she was diagnosed as having severe gastroesophageal reflux disease by endoscopic examination and concomitant pneumonia of the inferior lobe of left lung by chest X-ray finding, she was admitted to our hospital. When both diseases were considered recovered, she was allowed to start ingestion again on the 7th day after the admission. On the next day, she complained of recurrent abdominal pain, and she was diagnosed as having a small intestinal ileus. Oral intake was stopped and an ileus tube was inserted immediately. She developed pyrexia and hypotension on the 10th day and died due to sepsis on the 11th day. We obtained consent for an autopsy from her family on the day of death. Autopsy demonstrated that part of the ileum 30 cm oral from the ileocecal portion was completely impacted in the right obturator foramen. Therefore, we diagnosed that ileus was induced by obturator hernia. In general, an obturator hernia is thought to be rare as a cause of ileus and is not familiar to physicians. There was no erosion, ulcer or necrosis in the incarcerated intestine on autopsy

performed on the day of death. Even in the early stage before necrosis has occurred in the incarcerated intestine, the obturator hernia could induce serious complications such as sepsis particularly in immunocompromised hosts. We conclude that we should not overlook obturator hernia and should consider surgery when we encounter a dialysis patient with ileus.

緒 言

近年、高齢者の血液透析患者が増加しており、その合併症も多様である。透析患者の主な死亡原因としては、心不全、感染症、脳血管障害、悪性腫瘍があげられ、腸閉塞は12位(0.9%)である¹⁾。閉鎖孔ヘルニアは、腸閉塞全体の0.5%、全腹部ヘルニアの0.05~1.4%と比較的まれな疾患であり²⁻⁵⁾、体表から腫瘤として気づくことはほとんどなく、身体所見から診断することは難しい。最近では画像診断が進歩し、術前の診断率も向上しているが、本疾患を当初から鑑別診断に入れられるか否かが重要である。今回われわれは閉鎖孔ヘルニアによる腸閉塞から敗血症を発症し死亡した、原疾患が多発性嚢胞腎の82歳女性、血液透析患者を経験した。閉鎖孔ヘルニアという疾患に対する認識不足により、腹部～骨盤部CTでその所見を見落とした。ヘルニアの自然環納がおこると、症状の軽快と増悪を繰り返し比較的緩慢な経過をたどることもあるという一方で、本例のように腸管壊死に至る前の腸閉塞でも急激な悪化をたどることがあり、わずかの診断の遅れが致命的であることを銘じ、本疾患も念頭に入れておく必要があると考え、ここに報告する。

I. 症 例

82歳、女性。

主訴：嘔吐・心窩部痛。

家族歴：多発性嚢胞腎の家族歴は不詳であった。

生活歴：喫煙なし、飲酒なし。出産歴2回。

既往歴：1965年～高血圧症、1984年に多発性嚢胞腎を指摘される。1988年頃から腎機能障害が出現し、1990年1月より血液透析療法導入となる。腹部手術の既往はない。

現病歴：2004年11月28日、杖歩行にて散歩中に間歇的な右下肢痛の訴えがあり、夜から臥床がちとなった。11月29日の血液透析中は特に問題なく経過したが、その夜1度嘔吐した。翌朝も床上で嘔吐し、心窩部痛と悪寒戦慄があり、11月30日救急車にて当院救急外来を受診した。緊急上部消化管内視鏡検査にて高度逆流性食道炎と診断された。また胸部X線にて、左

下肺野にair bronchogramを伴う辺縁不鮮明の淡い浸潤影を認め、肺炎の併発と診断され、精査加療目的にて入院した。

入院時身体所見：身長 未測定、体重 46.3 kg、血圧 100/60 mmHg、脈拍 94/分 整、体温 38.7°C。意識はほぼ清明。中等度の認知症があるも簡単な病歴聴取は可能であった。悪寒戦慄の訴えがあり、四肢末梢は冷たかった。眼瞼結膜はやや貧血様で、眼球結膜に黄染は認めなかった。表在リンパ節は触知せず、胸部聴診上、左下肺にcourse crackleを聴取、収縮期雑音を聴取した。腹部は平坦軟であったが、腹部正中に肝臓、臍レベルに腎臓を触知した。下腹部や鼠径部には異常所見はなく、下肢に浮腫は認めなかった。右前腕に内シャントが造設されていた。神経学的所見は特に異常を認めなかった。

入院時検査所見(表)：白血球の左方移動とCRPの上昇があった。腎機能障害があり(透析翌日のデータである)、PT%の低下、高Ca血症、高P血症を認め、軽度の低酸素血症、代謝性アシドーシスおよび呼吸性代償を認めた。

入院時胸部XP(図1a)：左下肺野にair bronchogramを伴う辺縁不鮮明な淡い陰影を認めた。

入院時仰臥位腹部XP(図1b)：腹部左側に大腸ガスを認めるが、小腸ガスは指摘できなかった。腹部大動脈周辺から総腸骨動脈にかけて著明な動脈の石灰化が目立った。

臨床経過：11月30日(入院日)、上腹部痛・嘔吐の精査で緊急上部消化管内視鏡検査を施行した。中部食道から食道噴門接合部まで、多発性びらんと滲む出血を認め、重度の逆流性食道炎(Grade C)と診断した。絶飲食とし、輸液管理を行い、プロトンポンプ阻害薬を投与した。左下葉肺炎は嘔吐による誤嚥性肺炎として、Cefotiam (CTM) 1 g/dayおよびClindamycin (CLDM) 1,200 mg/dayを投与した。翌12月1日には解熱し、自覚症状も呼吸状態も改善していた。12月2日、間歇的な下腹部痛を訴えたが、腹部X線にて異常所見を認めず、浣腸・摘便による排便促進にて、入院後初めて便通がみられ、症状は自然軽快した。

12月4日、腹部症状は消失し、炎症所見も軽快していたが、Plt(4.3万)の低下、FDP(90.2 μg/mL)とD-dimer(47.2 μg/mL)の上昇を認めた。播種性血管

表 入院時検査所見

Hematology		Blood chemistry	
WBC	7,000/ μ L	TP	7.5 g/dL
stab	40%	Alb	3.8 g/dL
seg	47%	BUN	53 mg/dL
lym	12%	Cre	7.0 mg/dL
mono	1%	UA	6.8 mg/dL
RBC	$457 \times 10^4/\mu$ L	Na	140 mEq/L
Hb	11.7 g/L	K	5.2 mEq/L
Hct	38.3%	Cl	98 mEq/L
Plt	$15.1 \times 10^4/\mu$ L	Ca	11.2 mg/dL
		iP	6.6 mg/dL
Coagulation		GOT	25 IU/L
PT%	63%	GPT	12 IU/L
APTT	30.4 sec	γ -GTP	138 IU/L
Fbg	369 mg/dL	LDH	237 IU/L
		ALP	580 IU/L
Arterial blood gases on room air		T-Bil	1.9 mg/dL
pH	7.40	ChE	151 IU/L
pCO ₂	28 mmHg	Amy	159 IU/L
pO ₂	53 mmHg	Glu	61 mg/dL
HCO ₃ ⁻	15 mmol/L	T-Chol	160 mg/dL
BE	-6.3 mmol/L	TG	83 mg/dL
Sat	88%		
Erythrocyte sedimentation rate		Serology	
	32 mm/hr	CRP	6.5 mg/dL
		Ferritin	24.3 ng/mL

図 1 入院時 XP

a : 胸部 XP ; 左下肺に air bronchogram を伴う淡い肺炎像を認める。
 b : 腹部 XP ; 腹部左側に大腸ガスを認める。著明な動脈石灰化を認める。

内凝固症候群を考え、抗生剤を Meropenem (MEPM) 0.5 g/day に変更し、Nafamostat Mesilate (NM) 100 mg/day を開始した。12月6日(第7病日)には腹部症状は完全に消失しており、経口摂取を開始した。食欲良好であり、食後も特に腹部症状はみられなかった。

12月7日(第8病日)に再度腹痛と胆汁様嘔吐がみられ、腹部単純 X 線にて小腸ガスを認め、小腸イレウスの診断で、腹部～骨盤部 CT を撮影し(図2)、腹部外科にコンサルトした。腹部 CT では肝両葉および両側腎に多発した嚢胞が腹腔を占拠しており、転位した大

図 2 CT 所見

- a : 12/7 (第 8 病日) の腹部単純 CT. 肝両葉および両側腎に嚢胞が多発している. 大腸は虚脱しており, 小腸は拡張し fluid を貯留している. 腹水貯留, 著明な動脈石灰化がみられる.
- b : 12/7 (第 8 病日) の骨盤部 CT. 恥骨筋と右外閉鎖筋の間に約 2 cm 大の境界明瞭で内部が均一な類円形占拠性病変を認める.

腸は虚脱, 小腸が fluid で充満拡張していた (図 2 a). 骨盤部 CT では, 恥骨筋と右外閉鎖筋の間に約 2 cm 大の境界明瞭で内部が均一な類円形占拠性病変を認め, 閉鎖孔ヘルニアの所見であったが (図 2 b), 臨床経験と疾患に対する認識の不足により, その所見を見落とした. そして多発性嚢胞腎・長期透析患者・認知症・高齢などの患者背景を考え, このまま保存的治療を継続していくこととした. 絶飲食・中心静脈栄養として腹痛は治まったが, 翌 12 月 8 日 (第 9 病日) の腹部 XP 所見に改善がみられず, 消化器内科に依頼し,

透視下にてイレウス管を挿入した. 胸部 XP では入院時認めた肺炎像は消失していたが, 夜間に 39.2°C の発熱を認めた. 12 月 9 日 (第 10 病日) 収縮期血圧 70 mmHg まで低下し, 内シャントが閉塞した. 12 月 10 日 (第 11 病日) 意識障害が出現, 下顎様呼吸となり, 血圧が徐々に低下し, 死亡した. 入院から死亡までの経過を図に示す (図 3). 患者の死後, 家族の了承を得て剖検を施行した.

剖検所見：マクロ所見では, 回盲部より 30 cm 口側の回腸が右閉鎖孔に嵌頓していた (図 4 a, b, c). 嵌

図3 入院後経過

CTM: cefotiam, CLDM: clindamycin, MPEM: meropenem, NM: nafamostat mesilate, DOA: dopamin, MSSA: methicillin sensitive *Staphylococcus aureus*

頓っていた腸管は憩室のようにヘルニア嚢を形成しており、腸管粘膜にはびらん、潰瘍、壊死や穿孔を認めなかった(図4d)。ミクロ所見では、嵌頓していた小腸の粘膜では、絨毛が平坦であった。粘膜固有層内に出血、毛細血管拡張およびフィブリン血栓、軽度の好中球浸潤が認められた。嵌頓部以外の腸管壁粘膜に変化はみられなかった。この剖検所見を踏まえた上で、再度12月7日の骨盤部CT(図2b)を見直すと、恥骨筋と右外閉鎖筋の間に認める類円形占拠性病変は、骨盤内の消化管と連続しており、閉鎖孔から脱出した小腸であったことを確認した。

II. 考 察

閉鎖孔ヘルニアは消化管が閉鎖管を通して大腿内側に突出する疾患で、1724年にArnaudらにより最初に報告され、1851年にObreらが最初にその修復に成功した。腸閉塞全体の0.5%、全腹部ヘルニアの0.05~1.4%と比較的まれな疾患であるが²⁻⁵⁾、本邦においては1926年に川瀬が最初の報告をして以来、2000年12月までに498例の報告がある⁶⁾。本疾患は体表から腫瘤として気づくことはほとんどなく、身体所見か

ら診断することは難しい。ヘルニア門が小さく強靱なため嵌頓をきたし易く、腸管壁の一部が嵌頓するRichter型嵌頓が半数以上を占める。嵌頓臓器は回盲弁から100cm以内の回腸が最も多く、60%が右側に発症している。初期には軽度の嘔気嘔吐、食欲低下のみのことが多く、また自然環納がおこると、症状の軽快と増悪を繰り返すなど比較的緩慢な経過をたどり、さらに診断を困難にする。Howship-Romberg徴候として知られている患側下肢の放散痛が約半数にみられ、閉鎖管内を走行する閉鎖神経の圧迫のためにおこる。腹部骨盤部手術歴のない慢性疾患患者に多く、多産婦や加齢、るい瘦による筋萎縮・脂肪組織減少から生じる骨盤床の緩みや、便秘・腹水・慢性肺疾患など腹腔内圧が上昇する病態が素因となる。男女比は1:20~25と女性に多く、80%以上が70~80歳代の痩せた女性に発症している。診断には、まず閉鎖孔ヘルニアを疑うことが最も重要であり、確定診断には同部位のエコーや骨盤部CT、あるいは腹腔鏡が有用とされる。一方、治療は外科的整復に尽きる。最近では腹腔鏡を用いて診断と同時に整復することが多い。術前診断は35.7%であり、致死率は15~25%と高く、絞扼性イレウスを呈した場合、その致死率は70%に及ぶとも

図4 剖検所見（肉眼的所見）

- a：回盲部より30 cm 口側の回腸が右閉鎖孔に嵌頓していた。
 b：閉鎖孔周辺の解剖
 c：嵌頓していた回腸
 d：嵌頓回腸の粘膜には、びらん・潰瘍・壊死はみられなかった。

いわれる⁷⁾。診断が難しく、治療は比較的容易であることから、診断をつけることより緊急手術へ持っていくことが重要である⁸⁾。Gunnar ら⁹⁾は、発症から手術までの平均時間が生還者で平均2.2日、死亡者で平均5.1日と報告しており、術前診断の有無にかかわらず、腸閉塞の治療として可及的早期に緊急手術を行うべきであるとしている^{8,9)}。

透析患者に発症した報告は、未報告の例も潜在していると思われるが、医学中央雑誌にてわれわれが検索した限りでは、会議録で2例、原著論文では滝花ら¹⁰⁾が報告した1例のみである。滝花らが報告した透析患者の1例は75歳男性であり、原疾患は慢性糸球体腎炎で、透析歴は12年であった。開腹手術の既往はない。高カリウム血症のため、ポリスチレンスルホン酸カルシウム（カリメート®）15gを連日服用しており、頑固な便秘のため、定期的な下剤の服用と浣腸の習慣があった。一方、本例は透析歴14年の高齢で痩せ型の多発性嚢胞腎を有する女性であり、出産歴は2回で腹部骨盤部手術の既往はなかった。長期透析患者に伴うい瘦および常習の便秘や多発性嚢胞腎による慢性的な

腹圧上昇が閉鎖孔ヘルニアの発症に関与したと考えられる。おそらく不完全閉塞（Richter型）で、入院前後に自然環納し、さらに逆流性食道炎のために絶飲食・安静にしたことで一時的に症状の軽快をみたものと推測する。逆流性食道炎や誤嚥性肺炎を合併した理由は、閉鎖孔ヘルニア嵌頓により嘔吐を繰り返したためと考えられる。入院前の散歩時の下肢痛は Howship-Romberg 徴候であったと思われる。

本例では、剖検で腸管壊死や穿孔はみられなかったが、第8病日より急激な悪化をたどり、敗血症となり死に至った。高齢透析患者は通常患者にくらべると、免疫能が低下しているため、bacterial translocation から敗血症に陥りやすい。本例でも腸閉塞状態から、容易に bacterial translocation をおこし敗血症となったと考えられる。こうした患者の臨床過程では決して判断を誤ってはいけない治療時期、すなわち“point of no return”があることを認識し、緊急手術に踏み切る決断が必要であった。診療科として閉鎖孔ヘルニア嵌頓への認知度の低さが放射線読影の見落としを招き、結果として緊急手術のタイミングを逃してしまった極

めて反省すべき症例であった。本例における“point of no return”は、CTを撮った第8病日であったと考えている。遅くても翌第9病日に腹部XPで改善をみなかったと判断した時が、開腹手術に踏み切る最後の機会であった。その時期を逸したことは腎臓内科医として強く責任を感じざるを得ない。高齢透析導入患者、長期透析患者が増加している現在、透析患者の日常生活活動度は必ずしも良好ではなく、漠然とした下肢痛や腹痛などの非特異的な症状は過誤されやすい。しかし免疫力の低下した高齢透析患者においては治療上の“point of no return”が一般より早いことを銘じ、おこり得る疾患を熟知した上で、しっかり鑑別する必要がある。

結 語

閉鎖孔ヘルニアにより腸閉塞を発症した、原疾患が多発性嚢胞腎の血液透析患者を経験した。透析患者においても、腹部手術歴がない痩せた高齢女性の腹痛で、特に下肢痛の訴えを伴う場合、閉鎖孔ヘルニアも鑑別疾患として念頭に入れる必要がある。

なお、本症例の要旨は第50回日本透析医学会学術集会・総会（2005年6月、横浜）において発表した。

文献

- 1) 日本透析医学会統計調査委員会：わが国の慢性透析療法の現況（2004年12月31日現在）。透析会誌 39：1-22, 2006
- 2) Shen-Shin Chang, Yan-Shen Shan, Yih-Jyh Lin, Yun-Sheng Tai, Pin-Wen Lin：A review of obturator hernia and a proposed algorithm for its diagnosis and treatment. *World J Surg* 29：450-454, 2005
- 3) Ziegler DW, Rhoads JE：Obturator hernia needs a laparotomy, not a diagnosis. *Am J Surg* 170：67-68, 1995
- 4) Jorge CG, Manuel RD, Alexandro ED：Incarcerated obturator hernia successfully treated by laparoscopy. *Surg Laparosc Endosc* 8：71-73, 1998
- 5) Ijiri R, Kanamaru H, Yokoyama H：Obturator hernia：the usefulness of computed tomography in diagnosis. *Surgery* 119：137-140, 1996
- 6) 田中 覚, 三好和裕, 竹田 幹, 谷川允彦：CT検査で術前診断した閉鎖孔ヘルニアの1例：本邦報告498例の検討。大阪医大誌 65：35-39, 2006
- 7) Shapiro K, Patel S, Choy C, Chaudry G, Khalil S, Ferzli G：Totally extraperitoneal repair of obturator hernia. *Surg Endosc* 18：954-956, 2004
- 8) Shipkov CD, Uchikov AP, Grigoriadis E：The obturator hernia：difficult to diagnose, easy to repair. *Hernia* 8：155-157, 2004
- 9) Gunnar A：Strangulated obturator hernia. *Acta Chir Scand* 150：337-339, 1984
- 10) 滝花義男, 別府正典, 野村照之, 山田 豊, 河野哲夫, 菊地宙恵：血液透析患者に発生した閉鎖孔ヘルニアの1例。臨牀透析 13：1545-1548, 1997