症例報告

外科手術が奏功した硬化性被嚢性腹膜炎の3症例

有 菌 健 二 松 岡 潔 宮 本 哲 明 早 野 恵 子
 福 井 博 義 清 原 英 雄* 高 野 定* 北 岡 光 彦**
 大塚 陽一郎** 久木山 厚子*** 桑 原 邦 治****
 熊本中央病院腎臓科 同外科* 同病理研究科** 宇土中央クリニック***
 桑原クリニック****

key words : 硬化性被嚢性腹膜炎, 治療, 外科手術

〈要旨〉

硬化性被嚢性腹膜炎は、CAPD 療法における最も重篤な合併症の一つである。今回、我々は、3 例の硬化性被嚢性腹膜炎に対し外科治療—癒着剝離術を施行した。症例 1 は 35 歳男性で CAPD 歴 7 年、腹膜炎 5 回の既往があり、カテーテル抜去 2 年後に発症。症例 2 は 50 歳女性で CAPD 歴 10 年、腹膜炎の既往はなく、カテーテル抜去直後に発症。症例 3 は 43 歳男性で CAPD 歴 8 年、腹膜炎 2 回の既往があり、カテーテル抜去 4 か月後に発症している。この 3 例に対し、待機手術下で腸管剝離のみにとどめる外科的処置、症例 2 および 3 については、カテーテル留置による術後の腹腔内洗浄を施行し、全例で良好な結果を得ている。従来、硬化性被嚢性腹膜炎の治療においては、保存療法が主体で、一部の症例でステロイドや免疫抑制剤が有効とされているが、外科治療については、術後感染、腸穿孔、瘻孔形成などの危険性が高く、困難であると指摘されてきた。しかし、今回の我々の症例にみられるように、イレウスが遷延化する症例での外科的処置は有効な治療法と考えられた。硬化性被嚢性腹膜炎の治療戦略の中で貴重な症例と考え報告する。

Three successfully treated surgical cases of sclerosing encapsulating peritonitis

Kenji Arizono, Kiyoshi Matsuoka, Tetsuaki Miyamoto, Keiko Hayano, Hiroyoshi Fukui, Hideo Kiyohara*, Sadamu Takano*, Mitsuhiko Kitaoka**, Youichirou Ohtsuka**, Atsuko Kugiyama***, Kuniharu Kuwahara****

Division of Nephrology, Division of Surgery*, Division of Pathology**, Kumamoto Central Hospital ; Uto Chuo Clinic*** ; Kuwahara Clinic****

Sclerosing encapsulating peritonitis (SEP) is one of the most serious complications of continuous ambulatory peritoneal dialysis (CAPD) and is associated with a high mortality rate. We report here, the successful surgical management of three patients with this complication of CAPD. The first case was a 35-year-old male who was treated with CAPD for 7 years and had 5 episodes of peritonitis. The second case was a 50-year-old female who was treated with CAPD for 10 years and had no episodes of peritonitis. The third case was a 43-year-old male who was treated with CAPD for 8 years and had 2 episodes of peritonitis.

All subjects had their bowel encased with a thick, fibrotic membrane. These patients were treated surgically by peeling the membrane away from the intestines and each showed a good outcome.

In the past, the surgical management of SEP was considered to produce poor results unlike our findings. We consider the surgical management of SEP to be a very useful strategy for treating SEP.

図 1 症例 1 の経過

はじめに

硬化性被嚢性腹膜炎 (sclerosing encapsulating peritonitis, SEP) はび慢性に肥厚した腹膜の広範な癒着により、持続的、間欠的あるいは反復性にイレウス症状を呈する症候群である。CAPD 療法における最も重篤な合併症の一つで、極めて予後不良な疾患である。1980 年 Gandhi ら¹⁾が報告して以来、多くの報告²⁻⁴⁾がなされ、その頻度は欧米では 1.4~7.3%^{2,3)}。本邦では 1.7%^{5,6)}とされている。本邦においても 2 年生存率は 51%^{5,6)}と極めて予後不良で、未だに決定的な治療法がないのが現状である。

今回我々は、外科手術が奏功した硬化性被嚢性腹膜炎の 3 症例を経験した。SEP の治療戦略の中で貴重な症例と考え報告する。

I. 症 例

症例 1

患者：35 歳，男性。

主訴：腹痛。

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1985 年 1 月慢性腎炎による慢性腎不全にて CAPD 導入。1991 年 9 月より除水不良にて CAPD 一時中止、腹膜カテーテルはそのまま血液透析施行。1992 年 4 月 CAPD 再開するも除水量得られず、5 月 CAPD カテーテル抜去し、以後血液透析を続行する。CAPD 継続期間内に腹膜炎 5 回、血性排液および 4.25%CAPD 液の使用歴がある。通常より便秘傾向であったが、1994 年 3 月腹痛、腹部膨満感にて入院した (図 1)。

入院時現症：身長 170 cm，体重 57 kg，血圧 170/102 mmHg，脈拍 72/分，体温 37.2°C。眼瞼結膜は軽度の貧血あり。心肺は異常なし。腹部所見では下腹部を中心

図 2 症例 2 の経過

に可動性のない小児頭大の腫瘤を触知した。

入院時画像所見：腹部 X-P ではニボーを形成し、拡張した腸管が著明で、また、腹部 CT では腸管の拡張像に加え、腹膜の肥厚像を認めた。

臨床経過：イレウス管による減圧、輸液等の保存療法にても症状は軽快せず、イレウス解除術を施行した。手術所見では、ダグラス窩に豆腐様の膿瘍形成を認め、腹膜は肥厚し、小腸は癒着にて一塊となっていた。トライツ靱帯から回盲部まではほぼ全腸管にわたり剥離した。腹膜内を大量の生理食塩水にて洗浄後、コンドロイチン硫酸を注入し閉腹した。術後、12 日目より経口摂取開始。術後、50 日目に腹膜と筋膜の間に小児頭大の多発性嚢胞形成がみられ、局麻下に切開ドレナージを施行し軽快した。現在、術後 5 年経過しているが、外来血液透析にて全身状態は良好である。

術中採取した腹膜は、浮腫状で血管の拡張、充血、小出血巣、軽度から中等度の炎症細胞の浸潤を伴っており、線維性に肥厚していた (図 5 a)。

症例 2

患者：50 歳，女性。

主訴：腹痛。

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1986 年 6 月慢性腎炎による慢性腎不全にて CAPD 導入。1995 年 10 月より除水不良にて週 1 回血液透析併用した。1996 年 10 月 CAPD を中止し、完全に血液透析に移行している。1996 年 11 月カテーテル抜去直後より、発熱、イレウス症状出現し、以後、月 2~3 回ずつイレウス症状を呈していた。1998 年 3 月加療目的にて当院紹介入院した。CAPD 歴 10 年で腹膜炎の既往はないが、血性排液の既往、β 遮断剤の使用、4.25%CAPD 液の使用歴があった (図 2)。

入院時現症：身長 148 cm，体重 38 kg，血圧 182/80 mmHg，脈拍 90/分，体温 36.9°C。眼瞼結膜は軽度の貧血を呈し、腹部所見で臍部を中心に小児頭大の腫瘤形成があり、消長を繰り返していた。

入院時画像所見：腹部 X-P では一部にニボー形成があり、小腸ガス像が著明で、腹部 CT (図 4) にて腹

図 4 腹部 CT 像

- a : 症例 2. 腹膜の肥厚が著明である.
b : 症例 3. 腹水がみられる.

膜の肥厚，軽度の脾腫，腸管内 fluid level 形成，ダグラス窩の一部に石灰化を認めた。

臨床経過：イレウス症状の改善を認めず，1998 年 4 月イレウス解除術，癒着剝離術を施行した。手術所見では，小腸は，白色調，糖衣様の被膜で被われ，一塊となっていた。トライツ靱帯から回腸末端にかけて癒着剝離を施行した。術中採取した腹膜は，硝子様変性の強い線維性肥厚を示していた（図 5 b）。術後は，癒着防止のため，カテーテル留置による約 3 週間の腹腔内洗浄（生食，ヘパリン，メイロンを使用）を施行。術後，7 日目より経口摂取開始した。一時，サブイレウス状態となり絶食となるも，術後 14 日目より経口摂取を再開，経過は良好で，現在外来透析施行中である。

症例 3

患者：43 歳，男性。

主訴：腹痛。

既往歴：20 歳鼠径ヘルニアにて手術。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1989 年 11 月慢性腎炎による慢性腎不全にて CAPD 導入。1997 年 11 月より除水不良にて，

CAPD 一時中止，腹膜カテーテルはそのままで血液透析施行。1998 年 1 月カテーテル抜去する。CAPD 経過中，腹膜炎 2 回の既往がある。1998 年 5 月より，腹痛およびイレウス症状を呈し，7 月下旬加療目的にて入院した（図 3）。

入院時現症：身長 164 cm，体重 54 kg，血圧 156/100 mmHg，脈拍 90/分，体温 36.0°C。眼瞼結膜は軽度の貧血あり。腹部所見で，右上腹部に腫瘤形成があり，消長を繰り返していた。

入院時画像所見：腹部 X-P ではニボー形成はないものの，小腸ガス像があり，腹部 CT（図 4）にて腹水，腸管の拡張および肥厚像がみられた。小腸透視では，十二指腸から上部空腸にかけての癒着を認めた。

臨床経過：入院後，絶食とし，高カロリー輸液を施行。1998 年 8 月末にイレウス解除術，癒着剝離術を施行した。手術所見では，小腸は，トライツ靱帯から回腸にかけて互いに癒着しており，さらにその上から白色調，繭状の被膜によって強固に被覆されていた。トライツ靱帯から回腸末端にかけて癒着剝離を施行。術中採取した腹膜は，硝子様変性が強い線維性肥厚を示

図5 腹膜光顕像（壁側腹膜 HE 染色，倍率×40）.
a：手術時（症例1），b：手術時（症例2），c：カテーテル抜去時（症例3），d：手術時（症例3）

し，カテーテル抜去時に採取した腹膜（7 か月前）（図5c）に比べてリンパ球を主体とする炎症細胞の浸潤，線維芽細胞の増生が強度であった（図5d）．術後，カテーテル留置による約3週間の腹腔内洗浄（生食，ヘパリン，メイロンを使用）を施行．術後，7日目より経口摂取開始し，以後経過は良好で外来透析中である．

3症例の比較を示す（表）．症例1および3では腹膜炎の既往があるが，症例2では腹膜炎の既往はなく，SEPに至った機序が異なることが示唆される．また，症例1および3では，経過中，発熱などの急性期の炎症症状は明らかでなく，CAPDカテーテル抜去後，各々2年，4か月で発症しているのに対し，症例2ではCAPD中止直後に急性期の炎症症状を伴いイレウス症状で発症している．術前の検査成績では，3症例ともすでに炎症所見は乏しく，腹部CTによる画像診断では，腹膜肥厚はあるものの，腸管にまで及ぶ著明な石灰化はなかった．症例1では鈍的剝離で，症例2および3では鋭的剝離で注意深く癒着剝離操作のみをし，また，症例2および3では術後の腹腔内洗浄を施行した．

II. 考 察

SEPの発症機序として，腹膜炎や長期にわたる浸透圧物質であるブドウ糖の関与等が考えられるが詳細は不明である．

Slingeneyerら³⁾の報告ではSEPの76%に腹膜炎がみられ，また，本邦における124例の硬化性被嚢性腹膜炎の検討⁶⁾でも約91%の症例で腹膜炎の既往があり，腹膜炎がSEPの大きな発症因子となっていることは疑いもない．しかしながら，症例2のように，腹膜炎の既往がない症例もあり，単一の要因では説明できない．先の本邦での124例の検討でも11例は腹膜炎の既往がない．発症時期についてもCAPD施行中，カテーテル抜去直後，カテーテル抜去後一定期間経過したのちに発症するなど一定しない．先の検討⁶⁾では，124例中67例が腹膜カテーテル抜去後に発症している．

従来，SEPの治療においては，経口摂取を中止し，経静脈的高カロリー輸液を含む保存的療法が主体であった．寺脇ら⁷⁾は，8例のSEPに対し経口摂取の禁止，高カロリー輸液，胃チューブによる減圧などの保

表 3 症例の比較

	症例 1	症例 2	症例 3
年齢, 性	35 歳, 男	50 歳, 女	43 歳, 男
原疾患	CGN	CGN	CGN
CAPD 歴	7 年	10 年	8 年
腹膜炎	5 回	なし	2 回
血性排液	(+)	(+)	(-)
4.25%液使用	(+)	(+)	(-)
β 遮断剤	(-)	(+)	(-)
発症	カテーテル 抜去 2 年後	カテーテル 抜去直後	カテーテル 抜去 4 か月後
CT 所見	腹水 (-) 腹膜肥厚	腹水 (-) 腹膜肥厚 石灰化 (ダグラス窩)	腹水 (+) 腹膜肥厚
Ht (%)	31.0	27.0	27.0
WBC (/μl)	3900	4200	7200
Alb (g/dl)	4.4	4.3	4.0
UN (mg/dl)	68	69	48
s-Cr (mg/dl)	15	11	11
CRP (mg/dl)	0.25	0.10	0.23
手術時間 (hr)	7	4	5
出血量 (ml)	400	150	370

存的な治療を施行しているが、中心静脈栄養から離脱できた症例は 3 例のみであったことを報告している。

それに対し、1993 年 Junor⁸⁾, Hawley⁹⁾らは腎移植後に免疫抑制剤を使用し、SEP の症状の軽快をみた症例を報告した。以後、ステロイドや他の免疫抑制剤使用の有効性の報告^{11,12)}が相次いでいる。本邦でも 23 例に対しステロイドの一般的投与 (20~40 mg/日)、8 例に対しステロイドパルス療法を施行し約 2/3 の症例で有効であったことが報告¹³⁾されている。しかしながら、無効、悪化例も存在し、特に感染が存在する時の危険性が指摘されている。このステロイドの効果の機序については、炎症性メディエーターを抑制し、血管新生や線維化を防止する作用が推定されているが、どのような症例にいつ投与開始するか、投与量、投与方法、投与期間などについてはさらなる検討が必要と思われる。

一方、外科手術については、Kittur ら¹⁴⁾は、外科療法の危険性、つまり、術後感染、腸穿孔、瘻孔形成などによる成績不良を指摘している。本邦でも小俣ら¹⁵⁾は、8 例中 5 例で開腹ないし腹腔鏡下の癒着剝離術および洗浄ドレナージを施行し、4 例は術後 1 年以内に敗血症にて死亡したことをあげ、外科治療の困難さを述べている。しかしながら、最近の本邦での検討¹³⁾では、19 例中 9 例が有効であったことが報告され、また、海外においても Smith ら¹⁶⁾が外科的処置が有効であった 2 症例を報告している。

今回、症例 1 および 3 では、急性期の炎症症状を欠いており、ステロイドの最適な投与時期ははっきりしなかった。しかし、組織学的には、症例 3 のカテーテル抜去時と SEP の手術時の腹膜所見にみられるように、カテーテル抜去後に炎症所見および線維芽細胞の増生が急速に進行している。症例 1 においては、手術で腹腔内膿瘍形成が存在したことから、ステロイド投与はむしろ危険で、外科的処置が最善の方法であったと思われる。急性期の炎症症状を欠いた理由としてカテーテル抜去前に症例 1 では約 8 か月、症例 3 では約 3 か月の休止期間 (その間 1 日 1 回の洗浄のみ) をおいたことも一因と考えられる。

症例 2 では、カテーテル抜去直後に急性期の炎症症状が出現しており、腹膜炎の既往もなく、唯一この時期がステロイド投与を行い、炎症を抑えるべき時期と考えられる。しかし、炎症が終息した時点ではすでに腹膜の癒着は完成しており、手術所見でも広範な癒着があったことから、外科的処置でなければ、イレウス症状は軽快しなかったと思われる。

我々の症例において外科的処置が成功した理由として、1) 全身状態が安定しており、待期手術が可能であったこと、2) 貧血の程度が軽く、炎症症状が乏しかったこと、3) 腸管にまで及ぶ石灰化がなかったこと、4) 広範な剝離が再び癒着の誘因となる可能性があるため、通過障害を解除する最小限度にとどめたこと等が考えられる。また、術後の腹腔内出血、血性滲出液も癒着の一因と考え、それを防止する目的で術後洗浄を加えた。その際、糖液かつ酸性液である CAPD 液を避け、生理食塩水を用いている。生理食塩水は酸性溶液であり、腹膜の生体適合性の観点から必ずしも適切ではないため、メイロンを加え中性溶液 (pH 7.0 前後) として使用した。

現在、症例 1 は 5 年、症例 2 は 11 か月、症例 3 は 8 か月であり、とくに症例 2 および 3 の観察期間は短い。3 症例とも術後短期間に常食摂取可能となっている。

SEP の際は、まず、経静脈的高カロリー輸液を含む保存的療法を行い、どの時点でステロイド治療を行うか、また、どのような症例にどの時点で保存療法による治療をあきらめ外科的処置に持ち込むかが今後の課題と思われる。ステロイド投与においては、腹腔内の感染を否定できるかどうか、外科的処置においては、腸管吻合施行例では縫合不全の可能性が考えられること、腸管壁まで石灰化が及んでいる症例では術後の腸管の蠕動運動が得られない等を念頭におき対処すべきと思われた。

急性期の炎症症状があり、癒着開始前のステロイド投与は有効と思われるが、すでに炎症所見が乏しく、ある程度癒着が進行した症例でのステロイド投与は無効と思われる。待機手術下で腸管剥離のみにとどめる外科的処置、術後の腹腔内洗浄等の工夫により、今後外科的処置の有効例も増えると考えている。イレウスが遷延する症例では、選択すべき一つの治療法と考えられる。我々は、3例の硬化性被嚢性腹膜炎に対し、全例に外科的処置を行い、すべての症例において満足すべき結果を得た。

おわりに

外科手術が奏功した硬化性被嚢性腹膜炎の3症例を経験した。SEPの経静脈的高カロリー輸液を含む保存的療法、ステロイド治療、外科的処置という治療戦略の中で貴重な症例と考え報告した。イレウスが遷延化する症例での外科的処置は有効な治療法と考えられる。

文献

- 1) Gandhi VC, Humayun HM, Ing TS, Daugirdas JT, Jablockow VR, Iwatsuki S, Geis WP, Hano JE : Sclerotic thickening of the peritoneal membrane in maintenance peritoneal dialysis patients. *Arch Int Med* 140 : 1201-1203, 1980
- 2) Denis J, Paineau J, Potel G, Fontenaille C, Guenel J : Continuous ambulatory peritoneal dialysis. *Ann Intern Med* 93 : 508, 1980
- 3) Slingeneyer A, Milon C, Mourad G, Canaud B, Faller B, Beraud JJ : Progressive sclerosing peritonitis : A late and severe complication of maintenance peritoneal dialysis. *Trans Am Soc Artif Intern Organs* 29 : 633-638, 1983
- 4) Rottembourg J, Issad B, Langlois P, Tranbale R, Amadou A, Degroc E, Legrain M : Loss of ultrafiltration and sclerosing encapsulating peritonitis during CAPD. Evaluation of the potential risk factors. *Adv Perit Dial*. 109-117, *Peritoneal Dialysis Bulletin Inc. Tronto*, 1985
- 5) 野本保夫, 久保 仁, 平野 宏, 酒井信治 : CAPD 療法の評価と適応に関する研究, 平成8年度厚生科学研究費補助金腎不全医療研究事業研究報告書, 45-48, 1997
- 6) 川口良人, 今田聰雄 : CAPD を継続するために一硬化性被嚢性腹膜炎の病態・治療・管理. *透析会誌* 31 : 97-103, 1998
- 7) 寺脇博之, 川口良人, 中山昌明, 久保 仁, 山本裕康, 加藤尚彦, 小坂直之, 大井景子, 重松 隆, 酒井 紀 : 腸管安静と中心静脈栄養にて対処した continuous ambulatory peritoneal dialysis (CAPD) 関連硬化性被嚢性腹膜炎 8 症例の治療成績. *透析会誌* 30 : 179-184, 1997
- 8) Junor BJ, McMillan MA : Immunosuppression in sclerosing peritonitis. *Adv Perit Dial* 9 : 187-189, 1993
- 9) Hawley CM, Wall CDR, Johnson DW, Campbell SB, Griffin AD, Rigby RJ, Petrie JJB : Recovery of gastrointestinal function after renal transplantation in a patient with sclerosing peritoneal dialysis. *Am J Kidney Dis* 26 : 658-661, 1995
- 10) Bhandari S, Wilkinson A, Sellars L : Sclerosing peritonitis : value of immunosuppression prior to surgery. *Nephrol Dial Transplant* 9 : 436-437, 1994
- 11) 仁科 良, 野本保夫, 義田千絵, 豊田雅夫, 田辺享史, 野口匡子, 遠藤温子, 中島桂子, 谷亀光則, 須賀孝夫, 遠藤正之, 堺 秀人 : 硬化性被嚢性腹膜炎の初期に副腎皮質ステロイドパルス治療が有効であった CAPD 患者の 1 例. *透析会誌* 30 : 335-340, 1997
- 12) Mori Y, Matsuo S, Sutoh H, Toriyama T, Kawahara H, Hotta N : A case of dialysis patient with sclerosing peritonitis successfully treated with corticosteroid therapy alone. *Am J Kidney Dis* 30 : 275-278, 1997
- 13) 野本保夫, 川口良人, 酒井信治, 平野 宏, 久保 仁, 大平整爾, 本間寿美子, 山縣邦弘, 三浦靖彦, 木村靖夫, 栗山 哲, 原 茂子, 濱田千江子, 佐中 孜, 中尾俊之, 本田雅敬, 横田慎二, 須賀孝夫, 森 典子, 下村 旭, 金 昌雄, 今田聰雄, 田中良治, 川西秀樹, 枝国節雄, 福井博義, 中本雅彦, 黒川 清 : 硬化性被嚢性腹膜炎 (sclerosing encapsulating peritonitis, SEP) 診断・治療指針 (案) —1997 年における改訂—. *透析会誌* 31 : 303-311, 1998
- 14) Kittur DS, Korpe SW, Raytch RE, Smith GW : Surgical aspects of sclerosing encapsulating peritonitis. *Arch Surg* 125 : 1626-1628, 1990
- 15) 小俣正子, 佐中 孜, 篠部道隆, 佐藤孝子, 樋口千恵子, 二瓶 宏 : 硬化性腹膜炎—診断・治療へのアプローチ. *腎と透析* 40 : 871-874, 1996
- 16) Smith L, Collins JF, Morris M, Teele RL : Sclerosing encapsulating peritonitis associated with continuous ambulatory peritoneal dialysis : Surgical management. *Am J Kidney Dis* 29 : 456-460, 1997