症例報告

腹膜透析中止後 11 年で発症した被嚢性腹膜硬化症の 1 例

平松 範行^{*1} 吉田 弘明^{*1} 根石 純子^{*2} 岡上 準^{*3}
 山本 多恵^{*4} 石井 義孝^{*1} 黒岩 卓^{*5} 金子 和光^{*5}
 廣村 桂樹^{*5} 植木 嘉衛^{*5} 野島 美久^{*5}
 深谷赤十字病院内科^{*1} 公立藤岡総合病院内科^{*2} 前橋赤十字病院内科^{*3}
 筑波大学先端学際領域研究センター^{*4} 群馬大学医学部第 3 内科^{*5}

key words : 腹膜透析, 被嚢性腹膜硬化症

〈要旨〉

被嚢性腹膜硬化症は、腹膜透析における重篤な合併症として認識されている。発症時期としては、腹膜カテーテル抜去後数週から数か月経って発症することが多いといわれているが、3~5 年後に発症したとの報告もまれではあるが散見される。われわれは、腹膜透析中止から 11 年と非常に長い期間を経てから発症した被嚢性腹膜硬化症と思われる 1 例を経験したのでここに報告する。

症例は 56 歳、男性。昭和 60 年 12 月腹膜透析導入。平成 2 年 11 月除水不良となったため腹膜透析中止し、血液透析へ移行した。腹膜透析を行った 5 年間で腹膜炎は一度のみであった。平成 13 年 12 月 15 日腹痛、嘔吐、食欲不振にて入院し、イレウスと診断された。空腸造影にて狭窄病変あり、12 月 25 日狭窄解除のため開腹した。空腸に狭窄病変を認めたのみでなく、腸管は一塊となっており、白色に混濁した厚い腹膜に被われており、被嚢性腹膜硬化症と考えられた。

当症例は、被嚢性腹膜硬化症が腹膜透析中止から 10 年以上経ても発症しうることを示唆しており、腹膜透析を行ったことのある症例の急性腹症を診療するにあたっては被嚢性腹膜硬化症の可能性を常に念頭に入れる必要があると思われる。

Encapsulating peritoneal sclerosis developed 11 years after the discontinuation of peritoneal dialysis : a case report

Noriyuki Hiramatsu^{*1}, Hiroaki Yoshida^{*1}, Junko Neishi^{*2}, Jun Okajo^{*3}, Tae Yamamoto^{*4}, Yoshitaka Ishii^{*1}, Takashi Kuroiwa^{*5}, Yoriaki Kaneko^{*5}, Keiju Hiromura^{*5}, Kazue Ueki^{*5}, Yoshihisa Nojima^{*5}

Fukaya Red Cross Hospital^{*1}; Fujioka General Hospital^{*2}; Maebashi Red Cross Hospital^{*3}; Tsukuba Advanced Research Alliance^{*4}; Gunma University School of Medicine, Third Department of Internal Medicine^{*5}

Encapsulating peritoneal sclerosis (EPS) is recognized as a severe complication in patients treated with continuous ambulatory peritoneal dialysis (CAPD). In most cases EPS develops several weeks to months after discontinuation of CAPD. Only a few cases of EPS were reported to develop between 3 to 5 years from the discontinuation of CAPD. In this report, we described a ESRD patient in whom EPS developed 11 years after the discontinuation of CAPD.

In 1985, a 56-year-old Japanese patient with ESRD started to receive CAPD. During 5 years of CAPD treatment, he developed peritonitis only once. In 1990, CAPD was discontinued and after that he was treated by maintenance hemodialysis. In December 2001, he was admitted to our hospital because of severe abdominal pain, vomiting and appetite loss, and a diagnosis of ileus was made. Stenosis was detected by a small bowel series, therefore synechotomy was performed. Not only stenosis of the small bowel but also intestine covered by thick

平松 範行 現 群馬大学医学部第 3 内科 〒371-8511 群馬県前橋市昭和町 3-39-15

Noriyuki Hiramatsu Tel : 027-220-8166 Fax : 027-220-8173 E-mail : nhiramat@med.gunma-u.ac.jp

〔受付：平成 14 年 11 月 8 日，受理：平成 15 年 7 月 10 日〕

peritoneum was found, so this case was considered EPS.

This case suggested that EPS could develop even 10 years after the discontinuation of CAPD. We need to consider the possibility of EPS in the differential diagnosis of a patient with acute abdomen, who has a history of peritoneal dialysis.

緒 言

欧米に比し、腎移植が十分普及しているとはいえない本邦において、腹膜透析は、血液透析と並んで慢性腎不全に対する透析療法として大変優れた治療法である。しかしその半面腹膜透析に伴う合併症も多く、十分安全なものとはいえない。

被嚢性腹膜硬化症は、腹膜透析の重篤な合併症の一つであり、一旦発症すると時に生命に関わる合併症であり、2 年生存率 51% との報告もある¹⁾。発症時期としては、腹膜カテーテル抜去後、数週から数か月経って発症することが多いといわれているが、3~5 年後に発症したとの報告も散見される^{2~4)}。しかし 5 年以上経てから発症したという報告は、われわれが検索した限りにおいては認められなかった。

今回、5 年の腹膜透析歴のある患者が腹膜透析中止後 11 年と非常に長い年月を経てから被嚢性腹膜硬化症を発症したまれな 1 例を経験したのでここに報告する。

I. 症 例

症例：56 歳，男性。

主訴：腹痛，嘔吐。

現病歴：昭和 60 年 12 月慢性腎炎からの慢性腎不全にて腹膜透析導入となるが、平成 2 年 11 月除水不良を理由に腹膜透析を中止し、腹膜カテーテル抜去、血液透析へ移行となる。腹膜透析を行った 5 年間で腹膜炎は一度のみで、保存的治療にて軽快されている。血液透析移行後は、特に大きな問題もなく経過していた。

平成 13 年 11 月 20 日朝食後、腹痛、嘔吐あり、翌日当院を受診し、精査加療目的にて入院となった。腹部 X 線上 niveau を認め、イレウスの診断となった。禁飲食、補液にて徐々に軽快、11 月 30 日一旦退院となる。

12 月 12 日頃より再び、嘔吐にて食事摂取できない状態となり、12 月 15 日、当院受診。腹部 X 線上、小腸ガス貯留像を認め (図 1)、イレウスの診断にて、再入院となった。

臨床経過：入院時身体所見上、腹部臍周囲部を中心に疼痛、圧痛を認め、やや膨隆がみられた。

図 1 腹部 X 線像

入院時検査では、WBC 4,400/mm³、CRP 0.62 mg/dL と炎症反応は軽度であった。腹部 CT 上、腸管は全体的に拡張しており、腸管壁の肥厚を認めた。腹水貯留像は認めなかった (図 2)。

禁飲食、補液、イレウス管留置にて経過観察とし、イレウス管を徐々に進めていった。しかし空腸辺りからイレウス管が進まなくなったため、空腸造影を施行 (図 3)。空腸に狭窄病変のあることが確認され、12 月 25 日狭窄解除のため開腹術を施行した。

術中所見：Treitz 靱帯から約 70 cm 肛側に索状物による狭窄を認め、剝離にて狭窄を解除した。空腸の狭窄だけではなく、腸管は一塊となっており、白色に混濁し、びまん性に肥厚した腹膜に覆われていた。小腸、大腸は一塊となっており、腹壁、後腹膜との癒着は非常に高度であり、剝離困難であった。手術時間は約 5 時間であった。

腹膜生検所見：びまん性の腹膜肥厚を認め、中皮は剝離し認められず、結合組織は線維性であった (図 4)。

術後経過：術後約 2 週間高カロリー輸液とし、術後 1 週間で徐々に経口摂取開始となった。経過は良好で、

腹痛、嘔気等の腹部症状もみられず、平成 14 年 1 月 14 日無事退院された。

現在、特に腹部症状なく経過しており、経口摂取も問題なく可能な状態であり、当院にて血液透析を継続されている。

II. 考 察

被嚢性腹膜硬化症は、1980 年に Gandhi ら⁵⁾により報告されて以来、腹膜透析の重篤な合併症として注目されている。

その原因としては、透析液の pH、グルコース濃度、グルコース分解産物、アルカリ化剤や透析液の注排液時の力学的ストレスなどが挙げられているが、発症機序、原因は明確にはされていない。最近では、中性液

図 2 腹部 CT 像

図 3 イレウス管造影

図 4 腹膜生検病理組織 (100 倍)

の開発等、透析液の改良が進んでおり、その効果については今後経過をみる必要がある。

発症頻度としては、欧米では 1.4~7.3%^{6,7)}、本邦における多施設の調査結果では、1.7%¹⁾や 2.8%⁸⁾との報告があるが、腹膜透析患者が増加するに従い、今後その頻度はさらに増加していくことが推測される。

被嚢性腹膜硬化症となった患者の 2 年生存率は 51%との報告があり¹⁾、一旦発症すると致死的な状態となりうる危険な合併症である。イレウスで発症することが多く、死因としては、敗血症、多臓器不全が多いとされる。

基本的な治療方針としては、腹膜、腸管の安静であり、絶飲、絶食、経鼻胃管による消化管内圧減圧、高カロリー輸液の実施とされる¹⁾。保存的治療にて自然寛解を得るというものである。積極的治療としては、手術療法と免疫抑制療法がある。イレウス自体に対しては、開腹癒着剝離術が有効であったとの報告もみられる^{8~10)}。大量出血、消化管穿孔、腸管壊死等の場合は、手術適応である¹⁾が、被嚢性腹膜硬化症に対する外科治療については、腸管の一部を切除した場合、縫合不全の危険性が非常に高いため困難なことが多く、また敗血症等による術後早期の死亡率が高いことより、慎重に行うべきである。免疫抑制療法としては、被嚢性腹膜硬化症発症初期にパルス療法を含むステロイド薬の投与が有効であったとの報告¹¹⁾やステロイドや免疫抑制剤の使用にて軽快したとの報告^{12~14)}もある。しかしながら、現時点では明確な投与法は確立されておらず、ステロイド等の使用に伴い、感染症の併発や消化管出血等の危険性もあるため、これら薬剤は慎重な投与を考える必要がある。また腹膜透析施行中の発症症例では、腹膜カテーテルを介して腹腔内洗浄を行い、軽快後カテーテルを抜去したとの報告¹⁰⁾もある。

本症例では、イレウスで発症し、当初保存的治療にて経過観察していたが、症状の改善がみられず、またイレウス管造影にて明らかな空腸狭窄が認められたため、狭窄解除のため開腹術を行った。その結果、空腸の狭窄病変のみでなく、腸管全体が白濁した肥厚性の腹膜に覆われ、癒着が著しかったため、癒着剝離術を施行した。その後経過良好で、経口摂取も可能な状態となり、手術療法が有効であったと考えられる。ステロイドの使用は行わなかった。術後比較的良好な経過を辿った原因としては、重篤な感染症を起こさず、炎症反応がさほど強くなかったこと、二次性副甲状腺機能亢進症のため $\text{Ca} \times \text{P}$ 値が高いにもかかわらず、腸管自体の石灰化が比較的軽度であったことなどが挙げられる。

当症例は、腹膜透析中止から 11 年と非常に長い年月が経過してから発症した。被嚢性腹膜硬化症は、腹膜透析中止後 5 年以上経てから発症したとの報告はまれであり、さらに 10 年以上経てから発症したとの報告はみられなかった。そのような中、腹膜透析中止から 11 年も経過した初めて発症したこの症例は非常にまれな症例であると考えられる。

長い年月を経て発症した理由としては、二つを考えている。一つは腹膜の硬化がすでに何年か前から現在の状態に至っていたが、イレウスとして発症せず経過したのではないかという可能性と、もう一つは一般的な被嚢性腹膜硬化症に比べ腹膜の硬化が遅い slow progressive なタイプで、11 年かかって腹膜硬化が進行し、イレウス発症に至ったのではないかという可能性が考えられた。

また当症例が単なる癒着性イレウスではないかという見方もあるかもしれない。だが腹部手術の既往がカテーテルの留置、抜去以外ないこと、5 年間腹膜透析を行っていたこと、一塊となった腸管、白色に混濁し、肥厚した腹膜の術中所見、腹膜生検病理組織所見から当症例を単なる癒着性イレウスと片づけるわけにはいかず、やはり被嚢性腹膜硬化症と考えざるを得ない症例と思われる。

当症例は、被嚢性腹膜硬化症が腹膜透析中止から 10 年以上経ても発症しうることを示唆しており、腹膜透析を行ったことのある症例の急性腹症を診療するにあたっては被嚢性腹膜硬化症の可能性を常に念頭に入れる必要があると思われる。

結 語

CAPD 中止から 11 年と非常に長い年月が経過してから被嚢性腹膜硬化症を発症したまれな 1 例を報告した。

文 献

- 1) 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, 栗原 哲, 原 茂子, 濱田千江子, 佐中 孜, 中尾俊之, 本田雅敬, 横田眞二, 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 年度における改訂—. 透析会誌 31: 303-311, 1998
- 2) 栗原 怜: CAPD 患者に合併した硬化性被嚢性腹膜炎の 1 例. 腎と透析 29: 453-457, 1990

- 3) 友成治夫, 林 文宏, 沼田美和子, 栗山 哲, 折笠英紀, 森永正二郎, 川口良人, 細谷龍男: CAPD 中止後約 5 年で発症した硬化性腹膜炎の 1 剖検例. 透析会誌 31 (Suppl 1): 731, 1998
- 4) 渡邊 隆, 瀬戸洋平, 宮内義浩, 田中方士, 伊良部徳次, 村上信乃, 鈴木良夫: 腹水増加を伴い CAPD 中止後約 4 年で発症した硬化性被嚢性腹膜炎 (SEP) の 1 例. 腎と透析 49 (別冊腹膜透析 2000): 253-256, 2000
- 5) Gandhi VC, Humayan HM, Ing TS, Daugirdas JT, Geis WP, Hano JE: Sclerotic thickening of the peritoneal membrane in maintenance peritoneal dialysis patients. Arch Intern Med 140: 1201-1203, 1980
- 6) Denis J, Paineau J, Potel G, Fontenaille C, Guenel J: Continuous ambulatory peritoneal dialysis. Ann Intern Med 93: 508, 1980
- 7) Slingeneyer A, Mion C, Mourad G, Canud 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
- 8) 川西秀樹, 川口良人: 硬化性被嚢性腹膜炎 (SEP) の全国調査—1998 年 11 月の結果—. 腎と透析 49 (別冊腹膜透析 2000): 225-228, 2000
- 9) 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
- 10) 有蘭健二, 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: 外科手術が奏効した硬化性被嚢性腹膜炎の 3 症例. 透析会誌 32: 1259-1264, 1999
- 11) 仁科 良, 野本保夫, 義田千絵, 豊田雅夫, 田辺亨史, 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) Junor BJR, McMillan MA: Immunosuppression in sclerosing peritonitis. Advances in peritoneal dialysis 9: 187-189, 1993
- 13) 殷 熙安, 小林和夫, 丸山資郎, 荒川正昭: 硬化性被嚢性腹膜炎 (SEP) 2 例の治療経験. 透析会誌 30: 1093-1097, 1997
- 14) Bhandari S, Wilkinson A, Sellars L: Sclerosing peritonitis: value of immunosuppression prior to surgery. Nephrol Dial Transplant 9: 436-437, 1994
- 15) Mori Y, Matsuo S, Sutoh H, Toriyama T, Kawahara H, Hotta N: A case of a dialysis patient with sclerosing peritonitis successfully treated with corticosteroid therapy alone. Am J Kidney Dis 30: 275-278, 1997
- 16) 田上哲夫, 原 茂子, 乳原善文, 大和恒恵, 大瀬貴元, 中野寿美, 香取秀幸, 横田雅史, 竹本文美, 山田 明: 4 年間にわたる腹腔内洗浄により CAPD 療法中止後の SEP の発症を抑制し得た 1 症例. 腎と透析 51 (別冊腹膜透析 2001): 54-58, 2001
- 17) 川西秀樹: 被嚢性腹膜硬化症 (encapsulating peritoneal sclerosis: EPS) に対する治療戦略. 腎と透析 51 (別冊腹膜透析 2001): 36-38, 2001