症 例

脳梗塞に伴った巨大結腸症の1例

富山医科薬科大学第2外科（主任：藤巻雅夫教授）

勝 木 茂 美 田 沢 賢 次 笠 木 徳 三 島 田 一 郎
安 斎 裕 坂 本 隆 藤 巻 雅 夫

富山医科薬科大学第2病理

若 木 邦 彦

72歳，男性，4年前に脳梗塞で右半身片麻痺となり，尿失禁，便秘が出現．慢性便秘を主訴として来院し，巨大結腸症の診断で結腸左半切除術および自己腸管平滑筋移植を付加した人工肛門造設術を行い，経過良好であった症例を報告する．切除標本では粘膜面に pseudomelanosis coli を認めたが，器質的狭窄を認めず，拡張していたS状結腸の組織像では，神経叢の数の減少や萎縮像，神経細胞の空胞化を認め，筋層の肥厚を伴っていた．

特発性巨大結腸症は比較的稀な疾患で，過去10年間の本邦報告例は30例である．本症例では脳梗塞の既往があり，腸管壁に神経叢の数の減少や変性像は脳梗塞による denervation の可能性を示唆する．しかし，直腸側に器質的病変のないこと，直腸生検で acetylcholine esterase 染色が陰性であることから成人型巨大結腸症も否定できないと思われる．神経学的側面も含め今後さらに多くの症例を積み重ね検討する必要があると思われる．

索引用語：巨大結腸症，脳梗塞，特発性巨大結腸症

はじめに

特発性巨大結腸症は比較的稀な疾患である．脳梗塞に伴った成人型巨大結腸症の1例を経験したのでこれを報告し，あわせて巨大結腸について過去10年間の本邦報告例を中心として文献的考察を加えた．

症 例

患者：72歳，男性，元運送会社勤務．

主訴：便秘，腹部膨満．

家族歴：兄，60歳頃白血病にて死亡．姉，24歳頃産後死亡，詳細不明．

既往歴：昭和38年，事故のため陰茎切除術施行．昭和58年，高血圧症．

現病歴：昭和58年12月上旬脳梗塞にて倒れ，近医で4カ月間入院治療を受けたが，右半身不全マヒが残った．以前は便秘異常を認めなかったが，この頃より便秘気味となり，尿失禁が出現．昭和60年頃尿意を少し感ずるようになったが，便失禁のためにおむつを用いる

様になった．昭和62年4月より便秘が強くなり，尿失禁も頻回になってきたため，8月下旬，近医受診．下剤および浣腸による治療を受けたが，9月からは浣腸，下剤投与にても排便が困難となった．10月には食後，食物残渣物を嘔吐するようになり，腹部膨満が出現してきたため，10月27日当院受診となった．

現症：身長158cm，体重47kg，血圧176/124mmHg，貧血・黄疸はなく，表在リンパ節は触知しなかった．胸部では心音・呼吸音は正常．腹部では左側から正中にかけ膨満し，同部位に拡張した粘土硬の腸管を触知した．肛門診では Schnitzler 転移はなく，直腸内に多量の泥状便を触れた．なお，肛門括約筋の緊張は正常であった．

入院後の検査および経過：入院時検査成績（表1）では，アミラーゼ値の上昇およびCEA値の上昇を認めた．腹部X線写真では糞便で満ちた著明に拡張したS状結腸を認め，その最大径は8.5cmであった．注腸造影（図1-左）ではS状結腸から直腸にかけ著明な拡張を認め，その最大径は14.5cmであった．ガストログ

図1 左：注腸造影，昭和63年11月3日施行。右：腹部単純X線像，同年11月9日撮影。

表1 入院時検査成績

WBC	4900 /mm ³	TP	7.5 g/dl
RBC	468 × 10 ⁴ /mm ³	TTT	0.7 U
Hb	13.5 g/dl	ZTT	7.1 U
Ht	42.8 %	T-Bil	0.3 mg/dl
Plt	20.0 × 10 ⁴ /mm ³	D-Bil	0.2 mg/dl
		ALP	8.8 KA
Na	139 mEq/l	ch-E	0.67 ΔpH
K	4.9 mEq/l	GOT	14 U
Cl	102 mEq/l	GTP	8 U
Ca	8.9 mg/dl	LDH	295 U
P	3.6 mg/dl	γ-GTP	22 IU/l
		AMY	358 U
BUN	23.9 mg/dl		
Cr	1.1 mg/dl	Urine	
		Protein	(±)
AFP	5.0 以下 ng/ml	Glucose	(-)
CEA	7.1 ng/ml	Ketone	(-)
CA 19-9	21 U/ml	Urobilinogen	(-)
		Occult Blood	(-)

ラフィンを800ml 用いたが，送気で拡張したS状結腸による圧排のため，造影剤は下行結腸までしか進まず，結腸全体の造影は不可能であった。S状結腸から直腸にかけて，narrow segment，憩室，腫瘤陰影などは認

めなかった。以上より巨大結腸症と診断し，11月5日IVHカテーテルを挿入し保存的治療を開始した（図2）。連日の大量の排便につれて腹満感は消失したが，造影6日後の腹部X線写真で，S状結腸から直腸にかけて造影剤が残存していた（図1-右）。腹満が消失したため経口摂取を開始したところ，再び腹満が出現。直腸内に泥状便を触知したが，自力排泄できないため絶食とし，排気管を直腸内に挿入した。再度の食事開始後は腹満感が出現せず，排気管から大量の泥状便が1日中自然に流出する状態にあり，経過は良好であった。しかし，排気管を抜去すると再び腹満が出現するため，12月23日手術を施行した。

開腹所見ではS状結腸から直腸にかけ腸管の拡張およびS状結腸の過長を認めた。直腸上部を切除端とした結腸左半切除術を施行，直腸を曠置し，排便コントロールの目的で自己腸管平滑筋移植植付加人工肛門造設術¹⁾を行った。

切除標本ではpseudomelanosis coliのため粘膜面が黒褐色となっていたが，隆起性病変などは認めなかった。切除腸管の全長は82cm，口側端の幅7cm，肛門側幅14.5cmで，腸管壁は肛門に近づくにしたがって肥厚が高度となっていた。

図 2 経過表

図 3 組織像：左：口側切除端近傍の組織像，右：肛門側切除端近傍の組織像(HE 染色, $\times 40$, $\times 200$)

組織像では口側端近傍(図3-左)および切除部中央(各非拡張部)では正常と思われる神経叢を認めたが、拡張した肛門側切除端近く(図3-右)では筋層の肥厚とともに数の減少した萎縮性の神経叢と、神経細胞の変性消失を認めた。悪性像はなかった。尚、CEAは術前7.9ng/mlと高値を示したが、術後0.8ng/mlと正常化した。

術後経過は良好で人工肛門から1日2回の軟便排泄があり、食事開始後も腹満などの症状はなく、昭和63年1月31日退院となった。人工肛門からの注腸造影では、造影剤の流出が移植部で抑制される所見があり、回盲部～上行結腸に異常を認めなかった。なお術後の直腸生検では、acetylcholine esterase 染色は陰性であった。術後約1年経過した現在、人工肛門からの排便は良好で、腹部膨満もみられず、経過は順調である。

考 察

巨大結腸とは種々の原因で大腸が一過性でなく持続的に異常な拡張を示す状態のことで、通常長期間の便秘を主徴とする²⁾³⁾。

巨大結腸の分類は一定していないが、現在では成因により分類されており、大腸の発育、分化の異常の有無により、先天性、後天性巨大結腸に2大別され、さらに後者は器質的原因の有無により、器質的・巨大結腸

と特発性巨大結腸とに分けられる²⁾(表2)。先天性のものとしてはHirschsprung病が代表的疾患であるが、大橋ら⁴⁾は類似疾患として、megarectumを伴う慢性便秘症に対し、直腸肛門内圧面からの検討を加え、壁内神経系に異常はないが何らかの原因で内肛門括約筋が常にhypertonicな状態にあり、この結果として直腸結腸内への便塊貯留、さらに慢性便秘をきたすような疾患群に対し、high anal pressure syndrome(HAPS)と定義し、これに対する治療法を述べている。後天性のものでは、器質的・巨大結腸として表に示した種々の原因が考えられるが、潰瘍性大腸炎に続発した中毒性巨大結腸症の中で、斉藤ら⁵⁾は血管内皮にサイトメガロウイルス(CMV)感染を認めた例を報告し、CMV感染が病変を高度にした可能性を示唆した。また病理学的検索から、megacolonとは結腸壁平滑筋、特に内輪筋の変性により結腸壁が脆弱化し、強大な外縦筋に支持されている結腸紐部を除いて、結腸壁が内圧に抗しきれずに伸展され引きちぎられている状態であるとしている。

海老原ら⁶⁾はBolivia, La Paz市におけるChagas病によるとと思われる巨大結腸症を報告しているが、典型的な病理像では拡張部腸壁にしばしばAuerbach神経叢の炎症を伴うganglion cellの数的減少と固有筋層の筋炎所見を認めたとしている。

堀ら⁷⁾は向精神薬長期服用中の精神科入院患者の腹部単純X線写真(立位)を検討し、ガスあるいは便により結腸幅が6cm以上になったものを巨大結腸症としたところ、精神科患者の15%に認められると報告した。しかしながら、年齢、在院期間、抗精神病薬投与量、抗パーキンソン薬投与の有無、下剤投与の有無と巨大結腸症との間には有意な関係はなかった。

また特殊な症例としては、急性アメーバ赤痢によって中毒性巨大結腸症を合併した報告がある⁸⁾。Kupskyら⁹⁾は巨大結腸症を生じたParkinson病の患者の結腸の神経細胞内にガラス様封入体(Lewy body)を認め、中枢神経系の色素細胞と同様の変性が腸管の神経に生じていることを示唆した。慢性甲状腺炎に合併した巨大結腸の報告例¹⁰⁾では、直腸生検で粘膜の萎縮、粘膜固有層の線維化とリンパ球浸潤・間質の粘液物質の沈着を認め、腸管壁の変化が発症の一因であると示唆されたが、甲状腺ホルモン(T₄)補充療法で症状の改善を認めたという。myotonic dystrophyの合併例も報告されている。佐々木ら¹¹⁾の症例ではS状結腸から横行結腸におよぶ巨大結腸を認めたが、経過中S状結腸捻転

表2 巨大結腸の分類

[A] 先天性巨大結腸
① Hirschsprung 病
② 先天性の結腸狭窄、直腸・肛門の奇形によるもの
③ その他
[B] 後天性巨大結腸
I) 器質的・巨大結腸
① 潰瘍性大腸炎に併発する巨大結腸症
② Chagas 病による巨大結腸
③ 末梢側大腸の狭窄に続発する巨大結腸
1) 腫瘍性病変によるもの
2) 炎症性病変によるもの
3) 直腸・肛門部の術後合併症によるもの
4) 放射線療法の後遺症によるもの
5) 外傷後遺症によるもの
6) その他
④ 脊髄損傷の後遺症によるもの
⑤ 抗精神病薬などの薬物投与によるもの
⑥ 膠原病・感染症・各種中毒などによるもの
⑦ 過長結腸に伴うもの
⑧ その他
II) 特発性巨大結腸
① 幼児、小児にみられるもの
② 成人にみられるもの

表 3 特発性巨大

例数	報告者	年代	年齢	性	主 訴	拡張部位	手術術式	アウエルバッハ 神経節細胞	マイスナー 神経節細胞
1	水入ら	1981	50	男	便秘, 腹満, 疝痛発作	直腸～下行結腸下端	S 状結腸切除, 端々	多少減少	
2	三島ら	1982	78	男	便秘, 腹満, 呼吸困難	大腸全体 (S 状結腸中心)	施行せず	正常	正常
3	西川ら	1983	3	男	排便障害 (遺糞症)	S 状～横行結腸	施行せず		
4	清水ら	1983	81	男	下痢, 腹満, 腹痛	直腸～下行結腸	2 連続式人工肛門造設	aganglionosis (-)	
5	佐藤ら	1983	66	女	便秘, 腹満, 腹痛	下行結腸より口側結腸	結腸亜全摘, 端々	神経細胞の減少 (-)	
6	大石ら	1984	15	女	腹満, 便秘	S 状結腸	S 状結腸切除, 端々	正常	
7	白石ら	1984	48	男	腹満	下行結腸末端～S 状結腸	S 状結腸切除, 端々	aganglionosis (-)	
8	藤井ら	1984	57	男	腹満				
9	川瀬ら	1984	78	男	腹部膨隆	S 状結腸～直腸		正常	正常
10	浦 ら	1984	40	男	便秘	S 状結腸～口側結腸		認める	
11	大塩ら	1985	15	男	腹満, 腹痛		直腸, 結腸切除		
12	櫛引ら	1985							
13	"	"			腹満, 下痢, 便秘	全結腸 2 例	結腸切除術 3 例	減少消失	
14	"	"	13~79		下腹部痛	大腸全体 1 例		変性消失	
15	"	"				S 状結腸以下 1 例	保存的治療 1 例	変化なし	
16	岡 ら	1985	74	女	便秘	S 状～下行～横行結腸	Hartmann 手術	多少減少	存在
17	宮本ら	1985	40	男	イレウス症状	S 状結腸	S 状結腸切除	神経細胞正常	
18	山下ら	1986	17	女	腹満, 腹痛	全結腸	左半結腸切除, 腸管の固定	神経叢正常	
19	及能ら	1986	47	男	腹満, 便秘	横行～下行～S 状結腸	結腸切除, 端々	神経叢正常	
20	和田ら	1986	58	男	尿閉, 腹満	直腸～S 状結腸	S 状結腸切除, 人工肛門	認める	認める
21	杉原ら	1987							
22	"	"				直腸～S 状結腸	拡張腸管切除		
23	"	"		女			施行せず		
24	"	"	43~84	6例	腹痛, 腹満	近位横行結腸	左半結腸切除		
25	"	"	(平均59)	男					
26	"	"		2例		盲腸～上行結腸 ～脾弯曲部	結腸全切除		
27	"	"							
28	"	"					横行結腸の人工肛門造設		
29	渡辺ら	1987	45	男			施行せず		
30	"	"	20	女			施行せず		

症のため手術施行, 切除標本の組織学的所見では, 肛門側断端部近くの筋層, 特に内輪筋の一部に筋原線維の変性, 空胞化, 軽度の fibrosis を認めたが, 神経叢は正常であったという。また三好ら¹²⁾の 2 例中の 1 例では, 直腸機能検査で, a) 昇圧帯(肛門管)短縮, b) 直腸肛門反射の障害, c) 随意収縮力の低下(外括約筋)を認めたが, 結腸生検で粘膜の萎縮や間質の硝子化はなく, Congo-red 染色でも Amyloid は証明できなかった。他の 1 例では切除結腸の組織所見で神経節細胞の軽度減少, 筋層の軽度肥大を認めた。そして, 巨大結腸は myotonic dystrophy に伴う平滑筋障害によると思われる」と述べている。

後天性巨大結腸の中で器質的原因が明らかでないものを特発性巨大結腸と呼ぶが, 比較的良好な疾患で,

水入ら¹³⁾は 1969 年～1978 年の本邦報告例 18 例を集計しているが, 1979 年～1988 年の本邦報告例は表 3 の如く 30 例である。症例 3 は母子間の情緒面の不均衡から生じた幼児にみられたものである。成人の巨大結腸症の診断は, ①病歴上乳幼児期を通じて異常なく, 成人になって発症し便秘を主訴とすること, ②腸管壁内神経節細胞に異常を認めず, ③諸検査で器質的異常を認めないこと, とされている³⁾⁷⁾。

本症例は脳梗塞の既往があり, 腸管の壁に神経叢の数の減少や変性を認めることから, 脳梗塞による denervation や加齢による変化の可能性がある。しかし直腸側に narrow segment など器質的原因がないこと, 直腸生検で acetylcholine esterase 染色が陰性であることから, 特発性巨大結腸症も否定できず, 今後

結腸症本邦報告例

(1979年~1988年)

直腸生検	アセチルコリン エステラーゼ染色	直腸肛門 内圧反射	予 後	そ の 他	文 献
正常	陰性	正常	呼吸、循環不全で死(18日) 良好 腎、肝不全で死 良好	行動療法にて改善	綜臨 30：755—760 ICUとCCU 6：589—592 心身医 23：155—157 日臨外医学会誌 44：486 日臨外医学会誌 44：487
		正常		先天性のものか？	神奈川医学会誌 11：243 日臨外医学会誌 45：362 日医放線会誌 44：531
	陰性	正常	肺炎で死(3月)		日消病会誌 81：2653—2654
	陰性	正常陽性	良好	精薄者	日消病会誌 81：2642 日小児外会誌 21：895 日本大腸肛門病会誌 38：511 〃 〃 〃
		正常	良好(2年6月) 良好 軽快 良好(1年) 良好	全腸間膜固定不全	外科診療 114：668 岐阜大医紀 33：1433—1440 日外会誌 77：1113—1114 日臨外医学会誌 47：1131
正常	陰性	認められず	術前心筋梗塞にて死	巨大結腸症にて尿閉あり	臨泌 40：927—929 日本大腸肛門病会誌 40：550 〃 〃 〃 〃 〃 〃
			術後、回腸拡張、人工肛門、IVH 全身状態悪化、死 良好 良好	CIIIP CIIIP Cisapride投与にて改善 〃	内科宝函 34：255—262 〃

神経学的検討が進めば器質的巨結腸症に入る可能性もある。後天性巨結腸症の発現機序解明のためには、今後さらに多くの症例を積み重ね検討する必要があると思われる。

おわりに

脳梗塞に伴った巨大結腸症の1例を報告し、過去10年間の本邦報告例を中心に若干の文献的考察を加えた。

参考文献

- 1) 田沢賢次, 新井英樹, 坂本 隆他: Continent
Stoma 造設術の実際—Schmidt 法とその評価—,
臨外 41: 1779—1786, 1986
- 2) 里見匡迪, 下山 考: 巨大結腸症候群, 日臨 40:
1096—1097, 1982

- 3) Lane RHS, Todd IP: Idiopathic megacolon: A review of 42 cases. Br J Surg 64: 305—310, 1977
- 4) 大橋秀一, 桑田圭司, 岡本英三: 腸通過障害症候群 megacolon syndrome, 外科診療 25: 424—427, 1983
- 5) 斎藤 建, 清水英男, 二村信正他: サイトメガロウイルス感染症を認めた潰瘍性大腸炎に続発した Toxic Megacolon の 1 例, 病理と臨 1: 495—500, 1983
- 6) 海老原善郎, 辻本志朗, 跡部俊彦: Bolivia, La Paz 市における巨大結腸症, 東邦医誌 29: 646—657, 1983
- 7) 岡 敏二, 内田雄三, 藤富 豊他: 成人の特発性巨

- 大結腸症の 1 例, 外科診療 27 : 668—671, 1985
- 8) 西崎 統, 高尾信広, 米倉南明他 : 中毒性巨大結腸症を合併した急性アメルバー赤痢の 1 例, 日消誌 80 : 105—108, 1983
- 9) Kupsky WJ, Grimes MM, Sweeting J, et al : Parkinson' disease and megacolon : Concentric hyalin inclusions (Lewy bodies) in enteric ganglion cells, Neurology 37 : 1253—1255, 1987
- 10) 大橋 明, 増永義則, 堤 卓他 : 慢性甲状腺炎に合併した megacolon の 1 例, 大分病医誌 16 : 75—78, 1987
- 11) 佐々木春喜, 田代邦雄, 宮崎 保 : 巨大結腸症による S 状結腸捻転症を合併した myotonic dystrophy の 1 例, 日内会誌 73 : 1195—1200, 1984
- 12) 三好 甫, 吉田順一, 後藤幾生他 : 巨大結腸を伴った筋緊張性ジストロフィーの 2 症例, 臨神経 26 : 1017—1022, 1986
- 13) 水入紘造, 羽鳥知樹, 三好和夫他 : 特発性巨大結腸症の 1 例, 総合臨 30 : 755—760, 1981

A CASE OF MEGACOLON ASSOCIATED WITH CEREBRAL INFARCTION

Shigemi KATSUKI, Kenji TAZAWA, Tokuzo KASAGI, Ichiro SHIMADA, Yutaka ANSAI,
Takashi SAKAMOTO, Masao FUJIMAKI and Kunihiro WAKAKI*

Second Department of Surgery, and Pathology* Toyama Medical and Pharmaceutical University,
Faculty of Medicine

This paper describes a 72-year-old male patient with megacolon successfully undergone artificial anus colostomy added by left hemicolectomy and myenteric autografting, who has been paralyzed on right side due to cerebral infarction and suffered from incontinence of urine and constipation since 4 years ago.

In the resected specimen pseudomelanosis coli was found on mucous membrane but no organic stricture was shown. Histologic feature of the dilated sigmoid colon revealed a decrease in number and atrophy of nerve plexus, vacuolation of nerve cells, and hypertrophy of muscular tunics.

Idiopathic megacolon is a relatively rare disease and 30 cases have been reported in Japan during the past 10 years. In this case his history of cerebral infarction and a decreased number and degeneration of nerve plexus of enteric wall suggested a possible denervation due to cerebral infarction. However, from two, facts, no organic lesion on the colon and a negative result in acetylcholine esterase stain by colon biopsy, a possibility of adult megacolon could not be denied. Further accumulation of experience for this disease including neurological investigation might be essential.