

# 胎児期より腹腔内嚢胞を指摘され、出生3日目に小腸軸捻転を来した消化管重複症の一例

メタデータ	言語: jpn 出版者: 静岡産科婦人科学会 公開日: 2018-03-23 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 竹原, 啓, 土井, 貴之, 柏木, 唯衣, 山田, 智子 メールアドレス: 所属:
URL	<a href="http://hdl.handle.net/10271/3324">http://hdl.handle.net/10271/3324</a>

## 胎児期より腹腔内嚢胞を指摘され、出生3日目に小腸軸捻転を 来した消化管重複症の一例

### A case of duplication of the alimentary tract diagnosed prenatally as intraabdominal cyst, which resulted in intestinal volvulus at Day 3 after birth

富士宮市立病院 産婦人科  
竹原啓、土井貴之、柏木唯衣、山田智子

Department of Obstetrics and Gynecology, Fujinomiya City General Hospital  
Kei TAKEHARA, Takayuki DOI, Yui KASHIWAGI, Tomoko YAMADA

キーワード : intraabdominal cyst、duplication of the alimentary tract、intestinal volvulus

#### 〈概要〉

症例は33歳、1経産。妊娠36週5日に、超音波検査にて胎児腹腔内に直径3cmの嚢胞性病変を指摘した。胎児MRI検査から当初は膀胱憩室を疑った。妊娠38週4日に2830g、男児、Apgar score 9/10を経膈分娩した。児は出生後より哺乳がやや緩慢であった。日齢2のMRI検査で嚢胞は4cmに増大、腸管に隣接し、消化管重複症やメッケル憩室等が疑われた。日齢3の腹部レントゲン検査で、胃泡の拡張と大量の小腸ガスを認め、腸閉塞の診断で総合周産期センターに救急搬送し、同日緊急手術となった。4cmの回盲部嚢胞を軸として回腸が反時計回りに720度捻転しており、嚢胞を含めた虚血壊死部を切除し、回腸端々吻合が行われた。組織学的検査で消化管重複症と診断された。術後経過は良好で日齢16に退院となった。

胎児腹部嚢胞性病変を指摘した際は消化管重複症を念頭に置き、児に腸閉塞様の症状が出現した場合には、腸軸捻転を想定する必要がある。

#### 〈緒言〉

消化管重複症は消化管構造を有した球状または管状の構造物が消化管に隣接して存在する先天性の形成異常であり、すべての消化管に発生し、胎児・新生児の剖検例9000例に対して2例と胎児腹部嚢胞性病変の中では比較的稀な先天性疾患である。

胎児期に指摘された消化管重複症の93.1% (27/29)が、生後1年以内に待機手術を行っている<sup>1)</sup>。一方、消化管重複症の新生児症例113例を検討した報告では、消化管重複症発生部の腸間膜を軸とした腸軸捻転による腸閉塞が18例にみられ、そのうち13例に壊死や穿孔などの重篤な合併症を認めており<sup>2)</sup>、緊急対応が必要となる事例も散見する。

我々は出生前に胎児腹部嚢胞性病変を指摘し、出生後に消化管重複症が疑われ、日齢3に嚢胞を軸に小腸捻転をきたした回腸消化管重複症を経験した。

### 〈症例〉

33歳、4経妊1経産。既往歴・家族歴に特記事項はない。

**妊娠経過：**自然妊娠成立後、当院で妊婦健診を行い、母児の経過は順調であった。妊娠36週5日、超音波検査で児の右下腹部に直径3cm、球状の低輝度な単純性嚢胞を認めた(図1)。嚢胞の蠕動、嚢胞壁の2重構造は明らかではなかった。児は男児で、推定体重、羊水量は正常範囲内であり、他に明らかな器質的異常は認めなかった。妊娠37週4日、胎児MRI検査を施行し、胎児腹腔内嚢胞はT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号であり、膀胱と信号形態が類似していたため、当初、膀胱憩室を疑った(図2)。嚢胞はその後、超音波検査で大きさ・形態・輝度に変化を認めなかったため、小児科と協議の上、経過観察とし、出生後に精査予定とした。

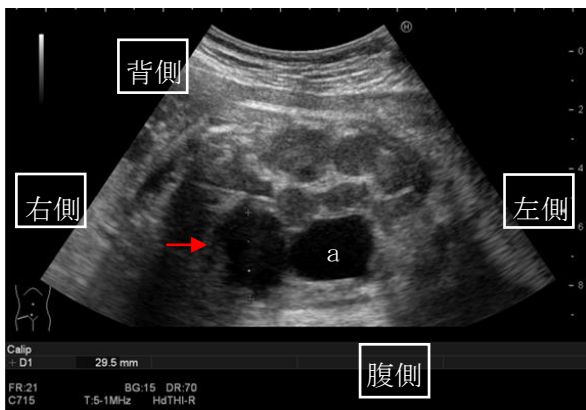


図1 妊娠36週5日 胎児超音波画像

赤矢印：嚢胞性病変 a：膀胱  
右下腹部に3cmの嚢胞性病変を認めた。蠕動、壁の2重構造は明らかではなかった。

**分娩経過：**妊娠38週3日、前期破水で入院された。妊娠38週4日、微弱陣痛のため、オキシトシンで分娩促進を行い、2830g、男児、

Apgar score 9/10 を経膈分娩された。臍帯動脈血ガスはpH 7.34、BE -0.5 mmol/l、 $\text{HCO}_3^-$  25.2 mmol/l であった。

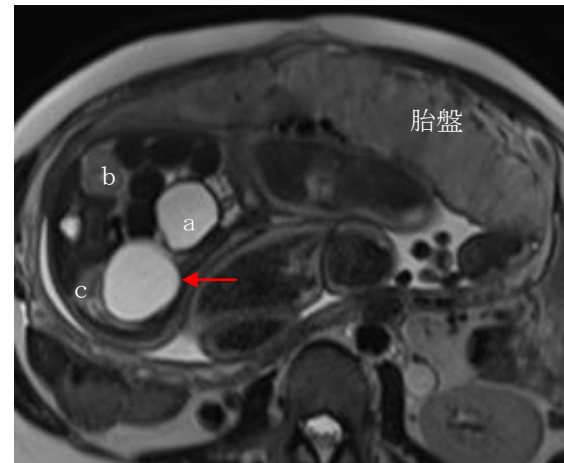


図2 妊娠37週4日 胎児MRI検査 T2強調画像  
赤矢印：嚢胞性病変 a：膀胱 b：左腎 c：右腎  
右下腹部に3cmの嚢胞性病変を認めた。嚢胞は膀胱と連続しているように描出され、膀胱憩室が疑われた。

**出生後経過：**児は出生直後よりNICUで経過観察とした。出生後早期に自然排尿・排便を認めた。超音波検査で腹腔内嚢胞は出生前と同様の3cm大の単純性嚢胞であり、胸腹部レントゲン検査でも異常はなかった。しかし、哺乳は緩慢で、日齢1より補液と経管栄養が開始された。日齢2に行った腹部MRI検査で、嚢胞の大きさが4cmと増大し、腸管に隣接していた(図3)。画像診断から、重複腸管、メッケル憩室、腹膜嚢胞等を疑い、総合周産期センターでの精査を予定した。しかし、日齢3に児の腹部は膨満し、注入していたミルクの胃残が30ml/回と増加した。腹部レントゲン検査で胃泡は拡大、小腸ガスも目立っていたため、腸閉塞と診断し、総合周産期センターに緊急搬送された(図4)。



図3 日齢2 腹部MRI検査 T2強調画像

赤矢印：嚢胞性病変 a：膀胱 b：胃

腹腔内嚢胞は膀胱に隣接するが連続性は認めなかった。



図4 日齢3 腹部レントゲン検査

胃泡は著明で、小腸ガスを認め、症状からも腸閉塞と診断した。

搬送後の精査で消化管重複症、小腸部分捻転の可能性が疑われ、同日緊急試験腹腔鏡手術となった。腹腔内所見では4 cm程度の緊満した嚢胞が回腸末端部より3 cm口側の腸管膜側に位置し、嚢胞が軸となる形で回腸は720度反時計回りに捻転し、捻転部回腸は虚血壊死に陥っていた。捻転を解除し、嚢胞と隣接した虚血回腸を合併切除、回腸端々吻合にて再建した。

病理組織学的に嚢胞は平滑筋に覆われ、その平滑筋は正常回腸の固有筋層と連続していた。嚢胞の内腔には小腸粘膜構造を認めた(図5)。これらより回腸の交通性球状型消化管重複症と診断された。循環障害性変化を反映し、全体的に変性が強い検体標本であったが、悪性像は認めなかった。児の術後経過は良好で、日齢16に退院された。

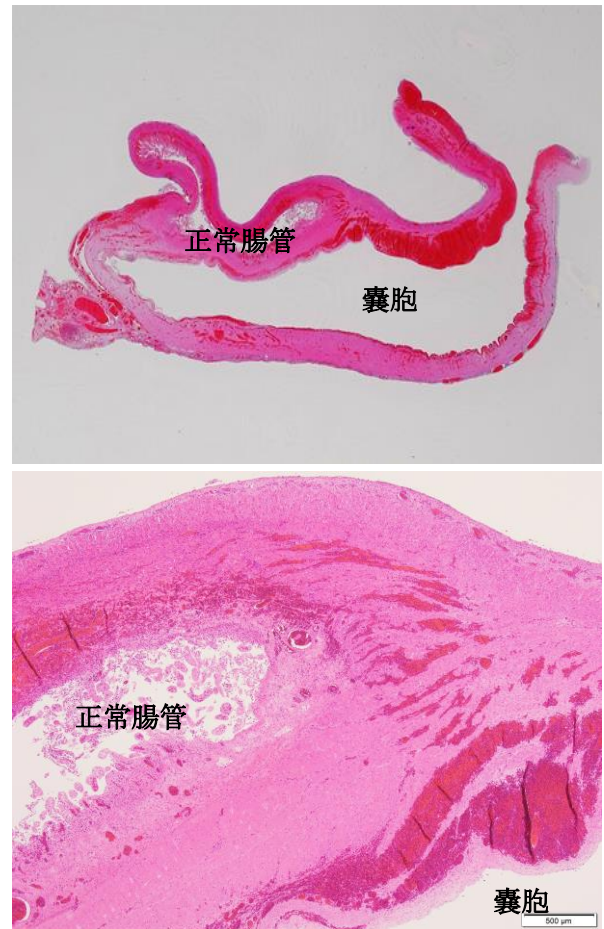


図5 病理組織像

壊死のため変性が強いが、嚢胞壁は腸粘膜、固有筋層を有し、隣接する正常腸管と固有筋層を共有していた (H.E.染色 上：弱拡大 下：強拡大)

〈考察〉

本症例では以下の2点が示された。胎児腹部嚢胞性病変を指摘した際は消化管重複症を念頭に置く必要があること、消化管重複症の疑いがある新生児に嘔吐ならびに腹部膨満などの腸閉塞様の症状が出現した場合には、腸軸捻転を想定して早急に対応しなければならないことである。

胎児に腹腔内嚢胞を認めた場合、嚢胞が実質臓器に取り囲まれていない限り、その発生部位の同定は難しく、消化器疾患、泌尿生殖器疾患、肝胆道疾患等、多くの鑑別疾患があがることから(表1)、出生前診断は困難である。消化管重複症の特徴的な超音波所見としてあげられる蠕動、壁の2重構造<sup>4)</sup>は本症例では明らかではなかった。胎児MRIは超音波検査と比較して、嚢胞の発生部位や他臓器との解剖学的な位置関係をより明確にするため、診断の一助となる可能性がある。

部位	疾患	嚢胞の数	嚢胞の性状
消化管	食道閉鎖 十二指腸狭窄 小腸閉鎖 重複腸管	0~1 2 数個~多数 1~数個	単純 単純 単純 単純~複雑
肝胆	胆管拡張症 肝血管腫	1 1	単純 単純
腎	水腎症 尿管管症 MCDK PCK 腎嚢胞	1~2 1~2 数個~多数 なし(腎の腫大) 1~2	単純 単純 複雑、大小不同 均一 単純
副腎	副腎嚢胞 神経芽細胞腫	1 1	単純 単純~複雑
卵巣	卵巣嚢腫	1	単純~複雑
膀胱	膀胱憩室 尿管嚢胞 泌尿生殖器奇形	1 1 1~多数	単純 単純 単純~複雑

表1 胎児腹部嚢胞の鑑別: 文献3より引用

消化管重複症は舌根から肛門に至る全消化管に発生し、①壁外層に平滑筋層を有している②内面が消化管上皮で覆われている③正常な消化管に隣接して筋層を共有している、と定義され

ている<sup>5)</sup>。発生機序としては腸管再疎通障害説<sup>6)</sup>、脊索発生障害説<sup>7)</sup>、部分双胎説<sup>8)</sup>など多くの説があるが、未だに明らかな成因は不明である。長嶺ら<sup>9)</sup>の180例の検討によると回盲部発生が最も多く35%、次いで結腸23%、小腸18%と続く。14%で合併奇形を伴い、脊椎奇形が最も多かった。症状は嘔吐、腹部膨満といった腸閉塞症状が最も多く、他に下血、腫瘤の触知、腸重積、腸軸捻転があるが、無症状で経過し、気づかれないこともある。診断は、超音波検査、CT、MRI、注腸造影等が行われる。消化管出血をきたす症例で、嚢胞内に異所性胃粘膜を有する場合には、99mTc-シンチグラムも有用な検査となる。加えて、脊椎奇形を合併した場合は単純X線撮影も有用である。またOrr<sup>10)</sup>らは消化管重複症に合併した悪性腫瘍を報告し、消化管重複症はmalignant potentialが高いと述べている。大腸では17.8%(8/45)<sup>11)</sup>、小腸では8%(4/50)<sup>12)</sup>で、消化管重複症から悪性腫瘍が発生したとの報告がある。このため、成人で消化管重複症と診断された場合には無症状であっても、経過観察せずに早期の外科的切除が推奨されている。治療は原則、重複腸管の切除であるが、重複腸管のみの切除は困難なことが多く、正常腸管を含めた重複腸管切除+端々吻合が基本術式である<sup>13)</sup>。

本症例は回腸の交通性球状型消化管重複症で、日齢3に嚢胞を軸に小腸捻転をきたした。消化管重複症の発症時期は67%が1歳までに<sup>14)</sup>、85%が2歳までに発症し<sup>15)</sup>、15歳以上の発症は稀で、成人後は偶発的に見つかるケースが多い。1歳未満の発症でみると、新生児期発症例が15%(27/180)、乳児期発症例が26.6%(48/180)との報告<sup>9)</sup>があり、出生後早期に手術を要するケースは少なくない。また消化管重複症の

新生児症例 113 例の検討を行った山田ら<sup>2)</sup>の報告では、消化管重複症発生部の腸管膜を軸とした腸軸捻転による腸閉塞が 18 例にみられ、そのうち 13 例に壊死や穿孔などの重篤な合併症を認めていた。本症例でも日齢 2 には消化管重複症を疑い、周産期センターへ紹介予定であったが、翌日に急変し、嚢胞と虚血回腸を合併切除し、回腸端々吻合にて再建することとなった。

胎児腹部嚢胞性病変を指摘した場合には、確定診断が困難であるため、病変を指摘した時点で、妊娠週数に関係なく速やかに高次施設へ紹介することが重要であると再認識した。これまで、当院において胎児異常を認めた場合は、近隣の高次施設に紹介し、その診断結果で周産期管理の方針を委ねていた。胎児異常の指摘も妊娠初期から中期が多く、またそれ以降の場合でも通常は分娩までは十分時間があり、対応が可能であった。今回は異常を指摘した時期が妊娠 37 週直前であったため、自施設での精査（胎児 MRI 検査）を優先し、膀胱憩室の診断から急変は考えにくいと判断した。確定診断が困難である胎児腹部嚢胞性病変に誤った診断をつけた点、消化管重複症が念頭になかった点、そして、胎児異常（膀胱憩室）を告げられた両親への説明とケアが十分ではなかった点も大きな反省点であった。

ただ、短い期間の中で、出生前から院内小児科と連携を図っていたため、急変後は可及的に対応することができ、高次施設に速やかに搬送・手術が可能となった。

胎児腹部嚢胞性病変のような確定診断が困難な胎児異常を指摘した際には、高次施設に紹介し、その診断精度を高め、分娩場所の選定を検討する必要がある。また、高次施設と情報を共有することで、急変した場合にも速やかに連携

が可能となるため、できる限り早急に高次施設へ紹介することが重要である。

### 〈結論〉

出生前に胎児超音波検査で腹部嚢胞性病変を指摘し、出生後に小腸軸捻転を発症した回腸消化管重複症を経験した。

胎児腹部嚢胞性病変を指摘した際は消化管重複症を念頭に置き、児に腸閉塞様の症状が出現した場合には、腸軸捻転を想定する必要がある。

### 〈参考文献〉

- 1) 村瀬成彦, 内田広夫, 平松聖史 他: 腹腔内嚢胞と出生前診断され単孔式腹腔鏡下補助下に切除した回腸重複症の 1 例. 日臨外会誌 2015; 76: 529-533
- 2) 山田高嗣, 金廣裕道, 吉村淳, 他: 小腸軸捻転を併発した新生児重複腸管症の 1 例. 日小外会誌, 1996; 32: 926-931
- 3) 村越毅 超音波断層法 胎児腹腔内嚢胞の鑑別 周産期医学 2016; 46: 573-579
- 4) Palasous A, De Vwra M, Martinez-Escoriza JC. Prenatal Sonographic Findings of Duodenal Duplication: case report. J Clin Ultrasound 2012 Nov 2. Doi:10.1002
- 5) Ladd WE, Gross RE. Surgical Treatment of Duplication of the Alimentary Tract. Surg Gynecol Obstet 1940; 70: 295-307
- 6) Bremer JL. Diverticula and duplications of the intestinal tract. Arch Pathol 1944; 38: 132-140
- 7) Veeneklaas GMH. Pathogenesis of Intrathoracic gastrogenic cysts. Am J Dis Child 1952; 83: 500-507

- 8) Ravitch MM. Hind gut duplication; doubling of colon and genital urinary tracts. *Ann Surg* 1953; 137: 588-601
- 9) 長峰信夫, 宮城靖, 遠藤巖 他. 消化管重複症-症例報告ならびに本邦文献報告 180 例の統計的観察. *外科診療* 1977; 19: 466-471
- 10) Orr MM, Edwards AJ. Neoplastic change in duplications of the alimentary tract. *Br J Surg* 1975; 62: 269-274
- 11) 秋田 智, 谷川和史, 末廣和長 他. 成人大腸重複症の 1 例 *日臨外会誌* 2014; 75(12): 3300-3304
- 12) 須磨崎真, 磯谷正敏, 原田徹 他. 成人小腸重複腸管の 1 例. *日臨外会誌* 2015; 76: 58-62
- 13) Langer JC, Somme S. Duplication of the alimentary tract. In Spitz L, Coran AG (eds), *Operative Pediatric Surgery*, Edward Arnold, New York 2006; 6: 433-444
- 14) Iyer CP, Mahour GH. Duplications of the alimentary tract in infants and children. *J Pediatr Surg* 1995; 30: 1267-1270
- 15) Laje P, Flake AW, Adzick NS. Prenatal diagnosis and postnatal resection of intra-abdominal enteric duplications. *J Ped Surg* 2010; 45: 1554-8