仙台市立病院医誌　**41**, 15-20, 2021

索引用語
腸管嚢腫様気腫症
腸重積
高圧酸素療法

症例報告

腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫症の若年男性の2例

野村栄樹，渡辺ゆみ子，平塚早貴
鈴木直生，佐藤公子，佐藤伊佐雄
平塚敬士，鈴木範明，長﨑　太
川村昌司，菊地達也

要旨： 腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫症（PCI）の2例を経験した．1例目は17歳男性．腹痛にて当院紹介，CT検査で右側結腸の腸重積が疑われ，注腸造影を行い整復した．整復後の上行結腸周囲には透亮像が多発し，PCIが疑われた．全大腸内視鏡検査（TCS）では，上行結腸に粘膜下腫瘍様隆起が多発，超音波内視鏡では音響陰影を伴う板状の高エコー像を認め，PCIと診断した．整復後は高圧酸素療法を行い，再燃なく経過している．2例目は21歳男性．腹痛のために救急外来受診．特徴的なCT所見から腸重積をきたしたPCIを疑い，注腸整復した．TCSでもPCIに矛盾しない所見であり，高圧酸素療法を行った．PCIは，基礎疾患のない特発性と基礎疾患を伴う続発性に分類される．腸重積を伴うPCIの特徴として本邦報告例の検討から，特発性・右側結腸に好発・若年男性に頻度が高いことが挙げられ，本2症例も同様であった．

はじめに

腸管嚢腫様気腫症（pneumatosis cystoides intestinalis：PCI）は腸管壁内に気腫性嚢胞が多発する比較的稀な疾患である[1,2]．本症に特有の症状はなく，無症状で検査の際に偶然に発見，あるいは腹痛や下痢，少量の血便などの軽微な症状を契機に発見されることが多いが，稀に腸重積の原因となり得る．今回腸重積を契機にPCIが発見された若年男性の2例を経験したので報告する．

症　例　1

【症例】 17歳，男性．

【主訴】 上腹部痛．

【家族歴】 特記事項なし．

【既往歴】 特記事項なし．

【現病歴】 生来健康であったが，2017年3月某日に上腹部痛が出現．持続したため近医に入院した．症状の改善なく翌日に当院転院となった．

【来院時現症】 身長165 cm，体重50 kg，血圧115/70 mmHg，体温37.5度，脈拍98回/分，臍周囲に圧痛あり，筋性防御なし，腸蠕動音は軽度亢進していた．

【血液生化学所見】 貧血，低栄養，炎症反応上昇を認めなかった．

【腹部骨盤部造影CT検査】 右側横行結腸にmultiple concentric ring signを認め，腸重積が疑われた（**図1a**）．また腸管壁に沿って含気性腫瘤の多発を認めた（**図1b**）．

【臨床経過】 診断と整復目的に施行したガストログラフィン®注腸造影ではカニ爪様所見を認め，右側結腸が陥入していた．愛護的に用手整復を加え，整復後の上行結腸には表面平滑な嚢胞様の透亮像が多発し，腸管嚢腫様気腫症（PCI）が疑われた（**図2**）．後日待機的に施行した全大腸内視鏡検査（TCS）では，上行結腸に表面平滑な粘膜下腫瘍様隆起が多発（**図3a**），超音波内視鏡検査で音響陰影を伴う板状の高エコー像を認め（**図3b**），PCIと診断した．整復後は症状再燃な

仙台市立病院消化器内科

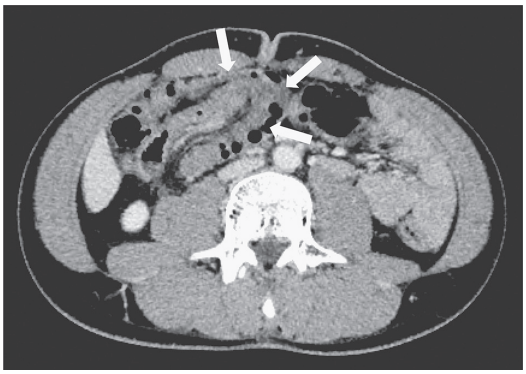

図 1a. 腹部骨盤部造影 CT 検査：右側横行結腸に multiple concentric ring sign を認め，腸重積が疑われた（矢印）.

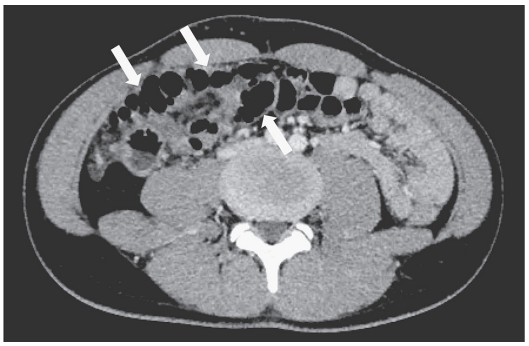

図 1b. 腹部骨盤部造影 CT 検査：腸管壁に沿って含気性腫瘤の多発を認めた（矢印）.

図 2. 注腸造影検査：右側横行結腸にカニ爪様所見を認め，腸重積をきたしていた．造影剤を注入し，愛護的に用手整復した.

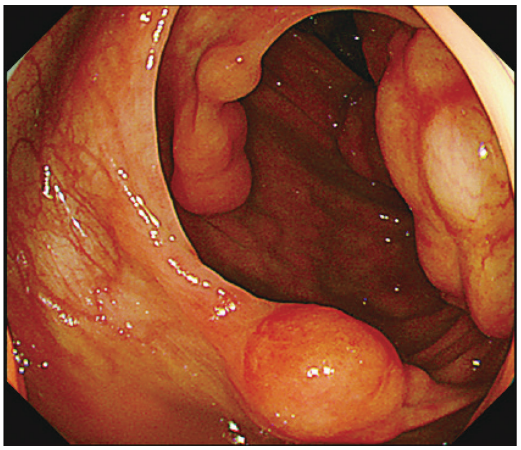

図 3a. 全大腸内視鏡検査：上行結腸に表面平滑な粘膜下腫瘍様隆起が多発していた.

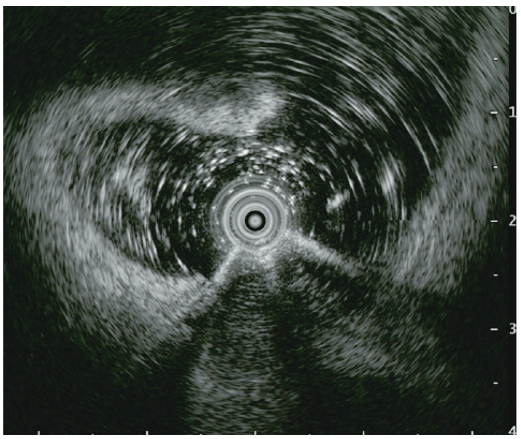

図 3b. 超音波内視鏡検査：音響陰影を伴う板状の高エコー像を認めた.

く退院となった．退院後，治療として高圧酸素療法を行う方針となり，専門施設に紹介した．高圧酸素療法施行 1 年後の経過観察 TCS では上行結腸の粘膜下腫瘍様隆起の縮小を認め，以後腸重積の再燃はきたしていない.

症　例　2

【症例】 21 歳，男性.
【主訴】 腹痛，嘔吐.
【家族歴】 特記事項なし.
【既往歴】 特記事項なし.
【現病歴】 2017 年 2 月頃より自然寛解する腹

痛を繰り返していた．4 月某日これまでより強い腹痛が出現，その後嘔吐あり当院に救急搬送された．

【来院時現症】 身長 189 cm，体重 61 kg，血圧 136/76 mmHg，体温 36.9 度，脈拍 66 回/分，臍周囲に圧痛あり，反跳痛なし．

【血液生化学所見】 白血球高値（16,700/μL）を認める他は特に異常はみられなかった．

【腹部骨盤部造影 CT 検査】 右側横行結腸に multiple concentric ring sign，腸管壁には含気性腫瘤の多発を認め，PCI による腸重積が疑われた（**図 4**）．

【臨床経過】 整復目的に注腸造影を施行し，陥入していた右側横行結腸を用手整復した（**図 5**）．上行結腸には嚢胞様の透亮像が多発し，PCI に矛盾しない所見だった．待機的な TCS で上行結腸に軟らかい粘膜下腫瘍様隆起が多発（**図 6a**），超音波内視鏡検査で音響陰影を伴う板状高エコー像を認め（**図 6b**），PCI と診断した．専門施設で高圧酸素療法を行い，以後腹部症状の再燃は認めていない．

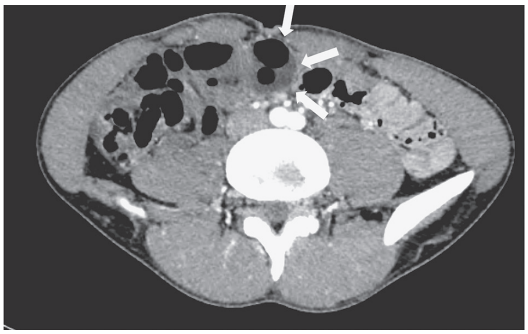

図 4. 腹部骨盤部造影 CT 検査：右側横行結腸に multiple concentric ring sign を認め（矢印），腸重積が疑われた． 腸管壁に沿って含気性腫瘤の多発を認めた．

図 5. 注腸造影検査：右側横行結腸にカニ爪様所見を認め，上行結腸周囲には嚢胞様の透亮像が多発していた．

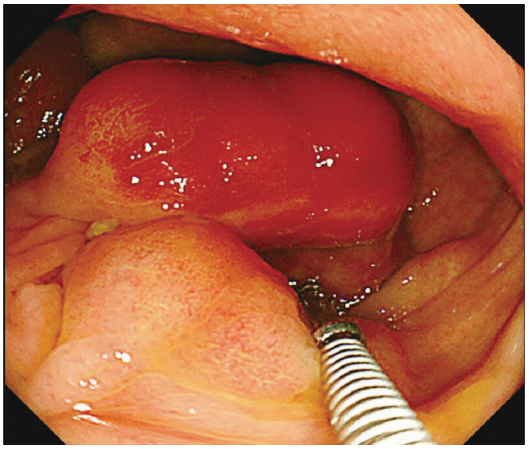

図 6a. 全大腸内視鏡検査：上行結腸に表面平滑な粘膜下腫瘍様隆起が多発していた．

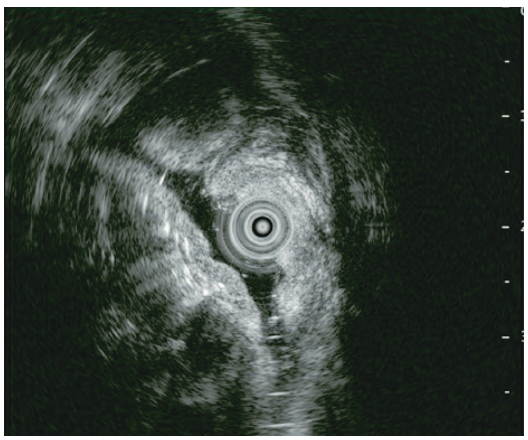

図 6b. 超音波内視鏡検査：音響陰影を伴う板状の高エコー像を認めた．

考　　察

PCI は，腸管壁内に多数の気腫性嚢胞を形成する比較的稀な疾患である．1730 年に Du Vernoi[1] が剖検例を報告しているのが最初であり，その後 Meyer によって命名された[2]．本邦では 1901 年に Miwa[3] が第一例を報告して以来，近年では画像診断の進歩で報告数が増加している．

PCI は，基礎疾患のない特発性と基礎疾患を伴う続発性に分類され，Koss らの報告[4] によると特発性 15%，続発性 85% とされている．続発性の基礎疾患には慢性閉塞性肺疾患，全身性エリテ

表 1.　腸重積を合併した PCI の本邦報告例

症例	報告年	報告者	年齢	性別	併存症	部　位	治　療	
							初回治療	二次治療
1	1983	小室[5]	21	男	なし	上行結腸	注腸整復	結腸右半切除術
2	1988	宮坂[6]	15	女	なし	盲腸	観血的整復術	
3	1995	白岩[7]	17	男	脳性麻痺	上行結腸	注腸整復	結腸右半切除術
4	1998	今村[8]	10	男	脳性麻痺	上行結腸～S 状結腸	注腸整復	結腸左半切除術
5	1999	矢内原[9]	12	女	SLE	上行結腸	注腸整復	
6	2000	尾山[10]	12	女	気管支喘息	盲腸	高圧浣腸	
7	2006	玉木[11]	21	男	気管支喘息	上行結腸	高圧浣腸	結腸右半切除術
8	2008	渡邊[12]	22	男	なし	上行結腸	内視鏡的整復	結腸右半切除術
9	2008	國末[13]	16	男	なし	盲腸～上行結腸	高圧浣腸	回盲部切除術
10	2009	西[14]	20	男	気管支喘息	上行結腸	高圧浣腸・高圧酸素療法	
11	2010	佐藤[15]	19	女	なし	上行結腸	結腸右半切除術	
12	2010	Nagata[16]	23	男	なし	上行結腸	上行結腸部分切除術	
13	2011	小林[17]	16	男	なし	盲腸	回盲部切除術	
14	2011	小松原[18]	15	男	なし	盲腸	回盲部切除術	
15	2012	松浦[19]	50	男	なし	盲腸～上行結腸	高圧浣腸・盲腸腹膜固定術	
16	2012	木水[20]	14	男	なし	盲腸～上行結腸	高圧浣腸・高圧酸素療法	
17	2012	小松[21]	18	男	なし	盲腸～上行結腸	回盲部切除術	
18	2012	小久保[22]	23	男	潰瘍性大腸炎	盲腸～横行結腸	観血的整復術	
19	2014	後藤[23]	17	男	なし	盲腸～上行結腸	内視鏡的整復・高圧酸素療法	結腸右半切除術
20	2014	矢野[24]	17	男	なし	盲腸～上行結腸	注腸整復	結腸右半切除術
21	2014	田辺[25]	21	男	なし	盲腸～上行結腸	注腸整復	回盲部切除術
22	2015	武井[26]	2	男	sJIA	上行結腸～横行結腸	観血的整復術・高圧酸素療法	
23	2016	バレンチナ[27]	43	女	なし	上行結腸	内視鏡的整復	
24	2016	齋藤[28]	17	男	なし	盲腸～上行結腸	結腸右半切除術	
25	2017	平山[29]	12	男	なし	上行結腸～横行結腸	高圧浣腸・高圧酸素療法	
26	2017	滝口[30]	17	女	なし	盲腸～上行結腸	注腸整復・高圧酸素療法	
27	2018	川島[31]	17	男	なし	盲腸～横行結腸	内視鏡的整復	結腸右半切除術
28	2018	大住[32]	20	男	なし	盲腸～上行結腸	注腸整復	結腸右半切除術
29	2019	片桐[33]	28	男	なし	盲腸～上行結腸	回盲部切除術	
30	2020	三森[34]	13	男	なし	上行結腸	高圧浣腸・高濃度酸素療法	
31	2020	三森[34]	10	男	気管支喘息	上行結腸	高圧浣腸・高濃度酸素療法	
32	2021	本症例 1	17	男	なし	盲腸～横行結腸	注腸整復・高圧酸素療法	
33	2021	本症例 2	21	男	なし	盲腸～横行結腸	注腸整復・高圧酸素療法	

SLE：全身性エリテマトーデス
sJIA：全身型若年性特発性関節炎

マトーデスなどの膠原病，炎症性腸疾患，悪性腫瘍，ステロイドやαグルコシダーゼ阻害薬の長期使用，化学療法などが挙げられている[4]．本2症例は若年で基礎疾患を有さないことから，特発性であると考えられた．

PCIの臨床症状には腹部膨満・腹痛・血便・下痢などが報告されているが，一般には軽微なことが多く，画像検査によって偶然に発見されることも多い．腸重積をきたしたPCIの本邦報告例は，1983年1月～2020年12月の期間を医学中央雑誌で「腸重積」と「腸管嚢腫様気腫症」，「腸管嚢胞状気腫症」または「腸管嚢胞様気腫症」をキーワードに検索したところ（会議録を除く），31例の報告[5-34]があり，これらに本2症例を加えた33例について検討を行った（**表1**）．男性27例・女性6例と男性に多く，年齢は2～50歳（平均18.7歳）と若年者に多かった．特発性が24例，続発性が9例（併存疾患を有する例とした：気管支喘息4例，脳性麻痺2例，全身性エリテマトーデス1例，潰瘍性大腸炎1例，全身型若年性特発性関節炎1例）と特発性が多く，気腫の発生部位は全例が右側結腸を含んでいた．本邦における2000年以降のPCI報告例の検討[21]では，発生頻度に性差はなく，発症年齢は60～80歳が全体の約半数を占め，発生部位は食道から直腸までの全消化管で起こり得るが，特発性PCIでは左側結腸，続発性PCIでは小腸及び右側結腸に発生する傾向があるとしている．一般的なPCIと異なり，腸重積を伴うPCIの特徴として，特発性・若年・男性・右側結腸に多いことが挙げられる．

PCIの治療として酸素吸入療法が挙げられ，特に高圧酸素療法が有用とされている[35]．その機序は，高濃度の酸素吸入により動脈血酸素濃度が上昇し，その酸素が気腫内の窒素と入れ替わり，入れ替わった酸素が組織や毛細血管に吸収されることにより気腫が消失するとされる．また，PCIが腸重積を伴った際には，腸管虚血，穿孔，出血等がないことを確認後，非観血的な整復が望まれる．整復には，注腸造影，大腸内視鏡を用いた方法などがある．本2症例は，水溶性造影剤であるガストログラフィン®による注腸造影を行い，愛護的に整復を施行した．整復後のさらなる追加治療として高圧酸素療法を行い，その後再燃をきたしていない．本2症例は保存的治療で改善を得たが，過去の報告では，重積を整復後に症状を繰り返し手術を要した例[5,7,8,11-13,24,25]や，高圧酸素療法後にも再発を繰り返し手術に至った例[23]のように，保存的治療のみでは完全寛解を得ることが難しい症例があり，慎重に経過観察していくことが望ましい．本2症例は，重積を解除し早期に高圧酸素療法を導入できたことで手術を回避できた可能性があると考えられた．

結　　語

腸重積を契機にPCIが発見された若年男性の2例を経験した．2例とも注腸造影を行い整復を行った後に高圧酸素療法を施行し，改善を得た．腸重積をきたすPCIは一般的なPCIと比べ，特発性・男性・若年発症・右側結腸に多いという特徴が挙げられ，本2症例も同様であった．若年男性の大腸腸重積の一因として鑑別に挙げるべき疾患と思われた．

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

文　　献

1） Du Vernoi GJ：Aer intestinorum tam subextima quam intima tunica inclusus. Obsergationae Anatomicae Acad Scient Imp Petoropol **5**：213-215, 1730

2） Heng Y et al.：Pneumatosis intestinalis：a review. AMJ Gastroentrol **90**：1747-1758, 1995

3） Miwa Y：Uber einen Fall von Pneumatosis cystoides intestinorum hominis. Zbl Chir **28**：427-428, 1901

4） Koss LG：Abdominal gas cysts（pneumatosis cystoides intestinorum hominis）：An analysis with a report of a case and a critical review of the literature. AMA Arch Pathol **53**：523-549, 1952

5） 小室恵二　他：腸重積を合併した腸管嚢腫様気腫症の1例．外科診療 **25**：117-119, 1983

6） 宮坂圭一　他：腸重積症を伴った腸管嚢腫様気腫の1例．日消誌 **85**：302, 1988

7） 白岩　浩　他：腸重積を契機に発見された腸管嚢胞様気腫症の1例．日腹部救急医会誌 **15**：784, 1995

8） 今村俊彦　他：腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫の1例．日小児栄消病会誌 **12**：51-55, 1998
9） 矢内原久　他：腸重積症を伴ったPneumatosis intestinalis．小児外科 **31**：534-538, 1999
10） 尾山勝信　他：腸管気腫性嚢胞症が原因となった腸重積の1例．日腹部救急医会誌 **20**：353, 2000
11） 玉木雅子　他：腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫症の1例．日臨外会誌 **67**：1333-1337, 2006
12） 渡邊克隆　他：腸管嚢腫様気腫症による腸重積の1切除例．日消外会誌 **41**：241-246, 2008
13） 國末充央　他：腸重積症で発見された上行結腸腸管嚢胞性気腫症の1例．日腹部救急医会誌 **28**：493-496, 2008
14） 西　鉄生　他：保存的に治療しえた腸重積にて発症した腸管嚢腫様気腫症の1例．日腹部救急医会誌 **29**：797-801, 2009
15） 佐藤梨枝　他：腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫症の1例．日臨外会誌 **71**：2052-2056, 2010
16） Nagata S et al.：Pneumatosis coli complicated with intussusception in an adult：report of a case．Surg Today **40**：460-464, 2010
17） 小林ゆかり　他：腸管嚢胞様気腫症が先進部となった腸重積の1例．日臨外会誌 **72**：2866-2870, 2011
18） 小松原隆司　他：腸管嚢胞性気腫症による腸重積の1例．臨外 **66**：1673-1677, 2011
19） 松浦正徒　他：腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫症の1手術症例．日消外会誌 **45**：459-465, 2012
20） 木水友一　他：腸重積を契機に発見された腸管嚢腫様気腫症の1例．日小児会誌 **116**：555-559, 2012
21） 小松聖史　他：若年男子に発症し腸重積の原因となった腸管嚢腫様気腫症の1例．日消外会誌 **45**：778-784, 2012
22） 小久保健太郎　他：潰瘍性大腸炎経過中に発症した腸管嚢胞様気腫症による腸重積の1例．日臨外会誌 **73**：3197-3202, 2012
23） 後藤康彦　他：腸重積を合併した腸管嚢胞性気腫症の1例．Gastroenterol Endosc **56**：3805-3809, 2014
24） 矢野有紀　他：腹腔鏡下手術を施行した腸管嚢胞様気腫症による腸重積の1例．手術 **68**：1745-1748, 2014
25） 田辺義明　他：短期間に腸重積を繰り返した腸管嚢胞様気腫症の1例．Prog Dig Endosc **85**：116-117，2014
26） 武井麻里子　他：腸管嚢腫様気腫症を合併した全身型若年性特発性関節炎．日小児会誌 **119**：1509-1513, 2015
27） オスタペンコ・バレンチナ　他：内視鏡的整復により回復した腸管嚢腫様気腫症による成人腸重積の1例．Prog Dig Endosc **88**：146-147, 2016
28） 齋藤　勝　他：腸重積により緊急手術を施行した腸管嚢腫様気腫症の1例．福島医誌 **66**：182-186, 2016
29） 平山　裕　他：腸重積を合併した小児腸管嚢胞様気腫症の1例．小児内科 **49**：767-770, 2017
30） 滝口進也　他：腸重積を契機に診断し高圧酸素療法を含む保存的治療が奏効した腸管嚢腫様気腫症の1例．臨床外科 **72**：1269-1273, 2017
31） 川島龍樹　他：腸管嚢胞様気腫症を先進部として反復した腸重積の1例．日臨外会誌 **79**：1479-1484, 2018
32） 大住幸司　他：腸重積で発症し腹腔鏡下切除術を施行した腸管嚢腫様気腫症の1例．日腹部救急医会誌 **38**：1047-1050, 2018
33） 片桐　忍　他：腸管嚢腫様気腫症による腸重積の1例．日臨外会誌 **80**：1147-1151, 2019
34） 三森宏昭　他：腸管嚢胞様気腫症による腸重積症．日小児会誌 **124**：1542-1547, 2020
35） Forgacs P et al.：Treatment of intestinal gas cysts by oxygen breathing．Lancet **1**：579-582, 1973