

症例報告

腹部食道重複症に対し腹腔鏡下摘出術を施行した1例

森 大樹, 石橋 広樹, 佐藤 宏彦, 久山 寿子, 浅野間 理仁,
島田 光生

徳島大学病院消化器・移植外科

(平成25年8月22日受付) (平成25年9月30日受理)

症例は9歳, 男児。学校健診にて尿潜血を指摘され当院小児科で精査中に, 造影CTで食道腹側に嚢胞性腫瘍が認められたため, 精査加療目的にて当科入院となった。上部消化管造影検査, 上部消化管内視鏡検査を施行し, 非交通性で球状型の腹部食道重複症の診断で腹腔鏡下重複腸管切除術を施行した。腫瘍は腹部食道壁腹側に認め, 球状で柔らかく食道壁と連続していた。切除標本は, 肉眼的には内腔は消化管粘膜様であり, 病理組織診断で切除標本に多列線毛上皮の裏打ちを認め, 上皮下には比較的厚い筋層と筋層内に落ち込む腺組織が散見され, 食道重複症と診断した。術後経過も良好にて術後8日目に退院した。腹部食道重複症は極めてまれな疾患であり, さらに腹腔鏡下にて切除し得た報告はなく, 本疾患の治療法の一つとして有用であると思われた。

はじめに

消化管重複症は, 舌根部から肛門に至る全消化管に発生する比較的まれな先天性奇形であり, Ladd & Grossにより提唱された疾患概念である¹⁾。全消化管の内, 十二指腸以下の腸管に発症するものが約80%を占めており, 食道は比較的まれな部位として報告されている²⁾。さらに腹腔鏡下摘出術を施行し得た報告例は認めない。今回, 食道重複症に対して腹腔鏡下摘出術を施行し得た症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例: 9歳, 男児

既往歴: 特記事項無し

家族歴: 特記事項無し

分娩歴: 39週0日, 3100g, 特記事項無し

現病歴: 学校健診にて尿潜血を指摘され, 当院小児科で精査の結果, 左下大静脈によるナットクラッカー症候群と診断されたが, 精査中の造影CTで食道腹側に嚢胞性腫瘍が認められたため, 精査加療目的にて当科紹介となった。

入院時現症: 身長131cm, 体重22kg, 体温36.8度, 腹部に腫瘍は触知しなかった。

入院時血液検査所見: 白血球 $4200/\mu\text{l}$, 血色素量 12.9g/dl , 血小板 $34.6 \times 10^4/\mu\text{l}$, AST 21U/L, ALT 9U/L, T-Bil 1.3mg/dl , PT 12.4sec (PT 活性100.6%), CRP $<0.05\text{mg/dl}$ であった。

腹部造影CT検査 (図1): 食道腹側に $22 \times 18\text{mm}$ 大の辺縁平滑な嚢胞性腫瘍を認め, 嚢胞壁には造影効果を認めた。

上部消化管バリウム造影検査 (図2): 食道左側に軽度圧排所見を認めるが, バリウムの通過は良好であった。

上部消化管内視鏡検査 (図3): 通常観察で食道粘膜に異常所見は認めなかった。EUS観察下では, 切歯列より $30 \sim 33\text{cm}$ の部位にかけて食道壁外に約 20mm 大のmassを認めた。内部エコーは均一なlow echoicで, カ

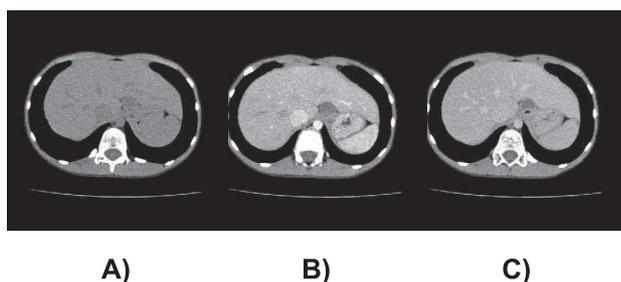


図1：腹部CT検査

A) 単純CT, B) 造影CT早期相, C) 造影CT後期相
 食道腹側に22×18mm大の辺縁平滑な嚢胞性腫瘤を認め、
 嚢胞壁には造影効果を認めた。

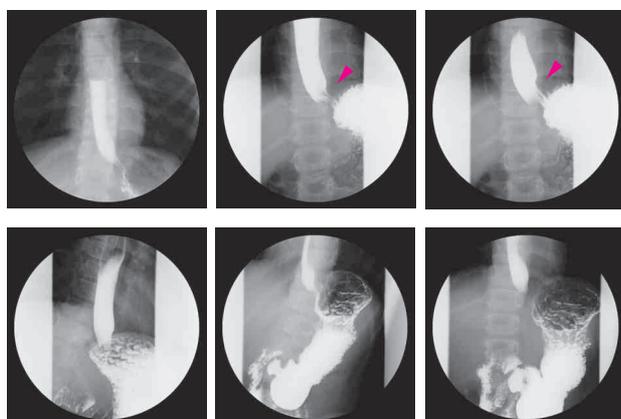


図2：上部消化管バリウム造影検査

食道左側に軽度圧排所見（矢印）を認めたが、バリウムの
 通過は良好であった。

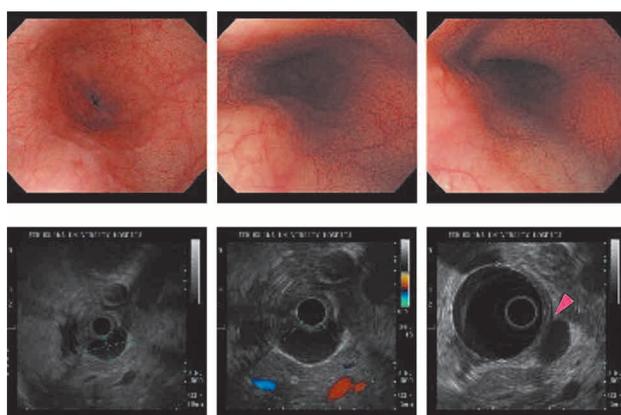


図3：上部消化管内視鏡検査

上段) 通常観察 下段) EUS観察
 通常観察で食道粘膜に異常所見は認めなかった。EUS観察下
 では、切歯列より30～33cmの部位にかけて食道壁外に約
 20mm大のmassを認めた。内部エコーは均一なlow echoic
 で、カラードプラでは血流は認めなかったが、壁は第4層
 との連続（矢印）を認めた。

ラードプラでは血流は認めなかったが、壁は第4層との
 連続を認めた。

手術術式：腹腔鏡下重複腸管切除術を施行した。

手術所見（図4）：腹部食道壁腹側に球状の腫瘤を認め、
 食道壁と連続していた。腫瘤は柔らかく壁外観は消化管
 様であった。食道重複症と判断し、重複腸管を切開し内
 腔面からの観察を行いながら重複腸管を正常食道から剥
 離、切除した後、食道筋層は温存されていたため、食道
 漿膜を縫合閉鎖した。

切除標本写真（図5）：肉眼的には内腔壁は腸管粘膜様
 に認められた。

病理組織学的検査所見（図6）：多列線毛上皮の裏打ち
 を認め、上皮下には比較的厚い筋層と筋層内に落ち込む
 腺組織が散見された。食道重複症と診断した。

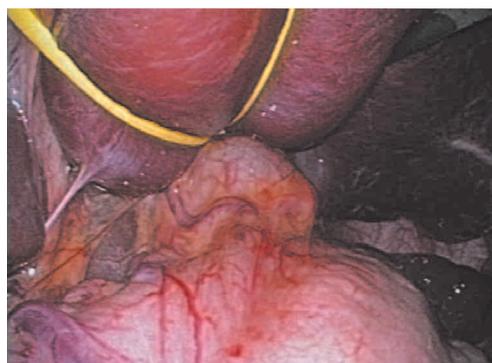


図4：手術所見

腹部食道壁腹側に球状の腫瘤を認め、食道壁と連続してい
 た。腫瘤は柔らかく壁外観は消化管様であった。



図5：切除標本所見

肉眼的には内腔壁は腸管粘膜様に認められた。

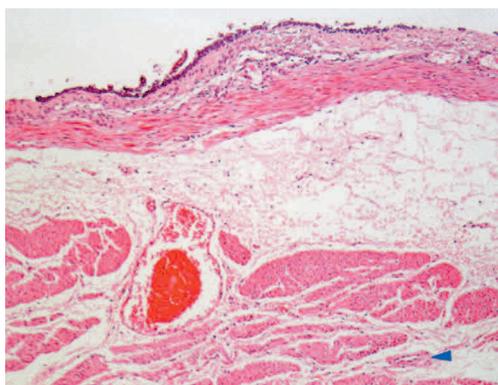


図6：病理組織所見
多列線毛上皮の裏打ちを認め、上皮下には比較的厚い筋層と筋層内に落ち込む腺組織（矢印）が散見された。

考 察

消化管重複症は比較的まれな疾患であるとされているが、本邦では1923年の田村³⁾の報告以来、現在までに小児例を中心に報告例が増加している。本疾患は1940年 Ladd & Gross¹⁾が enteric cyst, enterogenous cyst, giant diverticula, ileum dupe, unusual Meckel' diverticulum などと呼称されてきた疾患を共通の特徴を有する一つの病型として duplication of the alimentary tract として総称したことに由来する。その定義として、①1層または数層の平滑筋層を有すること、②内面が消化管上皮で被われること、③本来の消化管に近接し、それと筋層を共有していること、の3項目を満たすもの¹⁾としている。しかし、本症は種々の発生学的異常に起因するため、形態的にも組織学的にも多彩であり、今日では消化管と隣接しないものや、筋層を共有しないものも本症の範疇に含まれている。さらに、食道は発生時には呼吸器系とともに前腸由来の臓器であることから、胎生期の前腸は呼吸器系でみられる線毛上皮に分化しうるし、胎生期の前腸はその発生段階において一時期線毛上皮に被われており、食道重複症では線毛上皮を有する例がしばしばみられ、このような消化管上皮で被われていないものも本症に含まれている。本症例の病理組織学的検査所見でも粘膜は消化管上皮ではなく線毛上皮に被われていたが、前述のごとく食道に発生した胎生期の前腸に由来する消

化管重複症と考え、食道重複症と診断した。

本症の発生機序については胎生期の原始腸管の発生過程の障害より発生するものとして Bremer⁴⁾の再疎通障害説、Ravitch⁵⁾の部分双胎説、Veeneklaas⁶⁾の脊索発生障害説、腸管憩室説⁷⁾などがあり一元的に説明しうるものはないが、食道、縦隔内、大腸の重複症では脊椎奇形の合併が多いことから脊索発生障害説が有力視されている⁸⁾。

発生部位は舌根部から肛門まで全消化管に発生しうるが、十二指腸以下の腸管に発症するものが約80%を占めており、とくに回盲部を含む回腸に約50%が集中している。結腸で19%、縦隔・食道で18%とされている。本症の形態は球状型と管状型に分類されるが、球状型が72%と圧倒的に多くみられる。さらに小腸発症例では球状型が多く、結腸・直腸では管状型が多いとされ、隣接腸管との交通は管状型で約85%、球状型で4.7%に認められるとしている^{2,9)}。

発生頻度は剖検率の0.02%と報告されており¹⁰⁾、性別は男性57%、女性43%でやや男性に多く、発症年齢は10歳未満が66%であり、小児例が圧倒的に多い^{2,9)}。臨床症状としては、年齢、発生部位、形状により各様であり、無症状に経過することもあるが、合併症に伴う症状で消化管重複症が発見されることが多い。小児期では悪心、嘔吐、腹部膨満、成人では腹部腫瘤、腹痛が挙げられる^{2,8,9)}。脊椎の異常や泌尿生殖器奇形の合併、異所性胃粘膜、悪性化なども報告されている^{4-7,11)}。確定診断については、特異的な症状がないために術前診断はきわめて困難であり、術前診断は11.2%との報告もある¹²⁾。有用な検査としては単純X線撮影、超音波検査、CT、MRI、本来の消化管と交通型の消化管重複症の場合は消化管造影、内視鏡（ダブルバルーン内視鏡、カプセル内視鏡を含む）が挙げられる。また、異所性胃粘膜を有する場合は^{99m}TcO₄⁻シンチグラフィが有用である。単純X線撮影は腫瘤影の描出の他、合併疾患のひとつである脊椎異常の有無の確認に必要とされる。

治療は小児では腸閉塞などの原因となることや、成人では腹痛、出血、癌の発生¹³⁻¹⁷⁾がみられることから無症

状でも外科的切除が望ましいとされている^{5-7,11)}。消化管重複症は本症例のごとく、本来の消化管と筋層を共有しており、また腸間膜側の血行支配も正常腸管と共有のため、消化管重複症のみの摘出は困難で、正常腸管を含めて切除することが多い。

一方、腹腔鏡下手術の普及に伴い、2009年 Pal ら¹⁸⁾は、下血している10歳男児の消化管出血に対して腹腔鏡検査を行い、小腸の球状型の重複腸管と診断し、鏡視下に手術を施行したと報告している。腸管内に血液を認める部位の確認はおそらく容易で、さらに気腹によりワーキングスペースが広く確保され鏡視下手術が可能であったと考えられる。また、2008年 Duperron ら¹⁹⁾が管状型の小腸重複腸管を腹腔鏡下に手術を施行したという、小腸重複症に対して鏡視下手術を施行した報告例は散見されるが、one-trocar surgery により回腸の重複腸管を臍部より体腔外に引き出し手術を施行した Martino ら²⁰⁾のように腹腔鏡補助下に手術を行っている報告が多い。たしかに小腸重複症では鉗子孔より病変部を引き出して対腔外で切除することが可能であるが、食道重複症においてはその手技が施行できない。しかし、本症例のように正常腸管との交通性がない球状型であれば食道重複症であっても、鏡視下に重複腸管を切開し内腔面からの観察を行いながら切除を進めていくことで、食道穿孔を回避できる。さらに正常腸管と筋層を共有している場合は粘膜炎除去を行うことで、同様の術中合併症を回避でき、安全かつ容易に切除可能であり、鏡視下重複腸管切除術は非常に優れた術式であると思われた。

近年いろいろな疾患に対して鏡視下手術の報告がなされているが、食道の重複腸管に対する鏡視下手術の報告例は非常に少なく、そのほとんどが胸部食道重複症に対する胸腔鏡下手術の報告であり、腹部食道重複症に対する腹腔鏡下手術の報告例は認めていないため、今回、腹部食道の腸管重複症に対して腹腔鏡下に切除できた症例を経験したので報告した。

本症例のような小児の球状型腹部食道重複症の場合においても、比較的まれな疾患であるが、腹腔内のワーキングスペースは十分に確保され、重複腸管の発生部位や

嚢胞自体を直接鏡視下で確認することで、鏡視下に低侵襲にかつ安全に完全切除が可能であり、腹腔鏡下手術の良い適応と思われた。今後、消化管重複症に対する鏡視下手術の適応拡大が期待される。

結 語

消化管重複症に対しての鏡視下手術の報告例はまだ少ないが、今回、われわれが施行した腹部食道重複症に対する腹腔鏡下手術は診断、治療においても大変有用であると思われた。

文 献

- 1) Ladd, W. E., Gross, R. E.: Surgical Treatment of Duplication of the Alimentary Tract. *Surg. Gynecol. Obstet.*, 70: 295-307, 1940
- 2) 長嶺信夫, 宮城靖, 遠藤巖: 消化管重複症一症例報告ならびに本邦文献180例の統計的観察一. *外科診療*, 19: 466-471, 1977
- 3) 田村皎二: 希有なるイレウスの原因; 腸管嚢腫による腸管閉鎖症の一例. *中外医事新報*, 1033: 440-445, 1923
- 4) Bremer, J. L.: Diverticula and duplication of intestinal tract. *Arch. Path. Lab. Med.*, 38: 132-140, 1944
- 5) Ravitch, M. H.: Hind gut duplication-doubling of colon and genital urinary tracts. *Ann. Surg.*, 137: 588-601, 1953
- 6) Veeneklaas, G. M. H.: Pathogenesis of intrathoracic gastrogenic cyst. *Am. J. Dis. Child.*, 83: 500-507, 1952
- 7) Linc, R., Slanina, J.: The duplication of the gastrointestinal tract as part of a new syndrome of the neurenterochondral adhesion and its diagnosis. *Radiol. Clin. Basel*, 27: 16-19, 1958
- 8) 吉澤康男, 和田信昭: 消化管の奇形と先天異常消化管重複症 (腸管重複症). *臨消内科*, 5: 639-647, 1990
- 9) 長卓徳, 矢野広志, 小松良治: 無脾症候群に合併し

- た先天性消化管嚢腫の一剖検例—症例報告並びに消化管重複症 本邦報告239例の統計的観察. 久留米医学会誌, 40 : 274-284, 1977
- 10) Potter, E. L. : Causes of fetal infant death. In Pathology of the Fetus and the Newborn. Potter EL (ed). The Year Book Publishers, Chicago, 1952, pp. 54-57
 - 11) Ratanarapee, S., Lohsiriwat, D. : Adenocarcinoma arising in a duplication of the rectum : A case report and review of the literature. J. Med. Assoc. Thai., 70 : 284-287, 1985
 - 12) 星加奈子, 大田貢由, 金村栄秀, 小金井一隆 他 : 下血を契機に発見された回腸重複症の1例 本邦報告例の検討を含めて. 日本大腸肛門病会誌, 55 : 43-46, 2002
 - 13) Gibson, T. C., Edwards, J. M., Shafiq, S. : Carcinoma arising in a rectal duplication cyst. Br. J. Surg., 73 : 377, 1986
 - 14) Michael, D., Cohen, C. R., Northover, J. M. : Adenocarcinoma within a rectal duplication cyst : case report and literature review. Ann. R. Coll. Surg. England, 81 : 205-206, 1999
 - 15) Parvaiz, A., Stevens, R. J., Lamparelli, M. J., Jeffery, P. J. : A rare case of adenocarcinoma arising within a duplication cyst of the rectum : curative excision with 9-year follow-up. Ann. R. Coll. Surg. England, 87 : 8-10, 2005
 - 16) Orr, M. M., Edwards, A. J. : Neoplastic change in duplication of the alimentary tract. Br. J. Surg., 62 : 269-274, 1975
 - 17) William, F. H., Joseph, M. C. : Squamous cell carcinoma arising in duplication of the colon. Cancer, 47 : 602-609, 1981
 - 18) Pal, K., Shafei, H. E., Buainain, H. A., Mitra, D. K. : Successful laparoscopic treatment of hemorrhage from ileal duplication cyst in a 10-year-old Saudi boy. J. Laparoendosc Adv. Surg. Tech. A, 20 : 99-101, 2010
 - 19) Duperron, C., Martin-Phipps, T., Bernard, P., Esquis, P., *et al.* : Isolated ileal duplication with laparoscopic repair : a rare case. J. Chir. (Paris), 145 : 513-5, 2008
 - 20) Martino, A., Zamparelli, M., Cobellis, G., Mastroianni, L., *et al.* : One-trocar surgery : a less invasive videosurgical approach in childhood. J. Pediatr. Surg., 36 : 811-4, 2001

Complete laparoscopic surgery for a 9-year-old patient with abdominal esophageal duplication cyst ; Report of a case

Hiroki Mori, Hiroki Ishibashi, Hirohiko Sato, Hisako Kuyama, Michihito Asanoma, and Mitsuo Shimada

Department of Surgery, the University of Tokushima, Tokushima, Japan

SUMMARY

A 9-year-old boy was admitted to the hospital for close exploration of cystic tumor of the esophagus ventral detected in the abdominal contrast CT scan during the investigation of hematuria. Upper gastrointestinal fluoroscopic and endoscopic examination with ultrasonography showed a cystic tumor with the diameter of 2cm and smooth surface in the abdominal esophagus. Laparoscopic surgery was performed under the diagnosis of abdominal esophageal duplication cyst. At surgery, the soft and well-defined mass was present in the abdominal esophagus ventral and continuous with the esophagus wall. Histopathological study showed the cystic wall was lined with the pseudostratified ciliated epithelium and subepithelial muscle layer. These findings indicated abdominal esophageal duplication cyst. He was discharged on postoperative day 8 with good postoperative course. Abdominal esophageal duplication cyst is a rare disease. Laparoscopic surgery, which has not been attempted before this case, seems to be a useful treatment of abdominal esophageal duplication cyst.

Key words : esophageal duplication cyst, laparoscopic surgery