

—症例報告—

幼児期に腸回転異常症から中腸軸捻転をきたした1例

濱本 光¹ 竹下 輝¹ 佐野 透美¹ 上春 光司¹ 橋本 康司¹
 田嶋 華子¹ 早川 潤¹ 宮尾 昌樹² 高橋 翼² 右田 真¹

¹日本医科大学武蔵小杉病院周産期・小児医療センター小児科

²日本医科大学武蔵小杉病院周産期・小児医療センター小児外科

A Case of Midgut Volvulus with Intestinal Malrotation in a 4-year-old Boy

Hikaru Hamamoto¹, Hikaru Takeshita¹, Tohmi Sano¹, Kohji Ueharu¹,
 Kohji Hashimoto¹, Hanako Tajima¹, Jun Hayakawa¹, Masaki Miyao²,
 Tsubasa Takahashi² and Makoto Migita¹

¹Department of Pediatrics, Nippon Medical School Musashi Kosugi Hospital Perinatal and Pediatric Medical Center

²Department of Pediatric Surgery, Nippon Medical School Musashi Kosugi Hospital Perinatal and Pediatric Medical Center

Abstract

Malrotation is the incomplete rotation of the intestine during the fetal period. We report a case of midgut volvulus due to intestinal malrotation in a 4-year-old boy. The patient was hospitalized for abdominal pain and non-biliary emesis. Biliary emesis was observed on the second day, and intestinal obstruction was suspected. Enhanced abdominal computed tomography showed that the positions of the superior mesenteric artery (SMA) and superior mesenteric vein (SMV) were reversed left and right (SMV rotation sign), with swirling of the SMV around the SMA (whirlpool sign). The diagnosis was midgut volvulus with abnormal intestinal rotation. Emergency Ladd surgery was performed on the same day. Since surgery, the patient has not re-twisted and is in good condition. The majority of such patients are diagnosed within the first year of life with symptoms of biliary emesis and bowel obstruction. Although midgut volvulus is rare in young children, it is necessary to consider the possibility.

(日本医科大学医学会雑誌 2021; 17: 186–190)

Key words: malrotation, midgut volvulus

緒言

腸回転異常症は胎児期に腸が腹腔内の正常な位置に移動しないことで生じる先天異常である¹⁻³。本症は捻転や異常な靱帯によって腸管が圧迫され通過障害をきたし腹部膨満、胆汁性嘔吐を呈する。新生児、乳児期

に診断されることが多く、幼児期に診断される例は比較的まれである¹⁻⁵。今回、腹痛と非胆汁性嘔吐を初発症状とし、発症2日目に胆汁性嘔吐を認め、腹部造影CT検査により腸回転異常症による中腸軸捻転と診断した4歳の1例を経験した。新生児期に比べ幼児期の腸回転異常症による中腸軸捻転は少ないが胆汁性嘔吐を呈する症例では本病態も鑑別の一つとして考慮すべ

Table 1 Laboratory data on admission

<生化学>		<血算>		<凝固>	
AST	31 U/L	WBC	14,700 / μ L	PT/秒	11.7 秒
ALT	13 U/L	Neut	84 %	PT/%	94.8 %
LDH	252 U/L	Ly	12 %	PT/INR	1.03
CK	134 U/L	Mono	4 %	APTT	26.3 秒
T-Bil	0.9 mg/dL	RBC	521 $\times 10^4$ / μ L	Fib	238.8 mg/dL
AMY	50.0 U/L	Hb	13.5 g/dL	D-dimer	0.5 μ g/mL
Na	142 mmol/L	HCT	40.3 %	<尿検査>	
K	3.9 mmol/L	MCV	77.4 fL	尿 pH	7.0
Cl	103 mmol/L	MCH	25.9 pg	尿比重	1.041
Ca	10.1 mg/dL	MCHC	33.5 %	尿蛋白定性	2+
BUN	17.9 mg/dL	PLT	29.1 $\times 10^4$ / μ L	尿糖定性	-
Cre	0.27 mg/dL	<静脈血液ガス>		ウロビリノーゲン	\pm
TP	7.8 g/dL	pH	7.393	尿ケトン体	4+
Alb	5.4 g/dL	pCO ₂	35.1		
CRP	<0.1 mg/dL	BE	-4		
BS	144 mg/dL	HCO ₃	21.3		
		AG	17.7		
		sO ₂	48		



Fig. 1 Abdominal X-ray shows uneven distribution of colon gas to the left and stool storage.

きである。

症 例

4歳 男児

主訴：腹痛、嘔吐

現病歴：入院前日に腹痛と非胆汁性嘔吐が出現した。夜間に症状が増悪したため救急外来を受診。浣腸により排便がみられ腹痛が一時軽快したために帰宅となった。翌日、再度腹痛が出現したため、近医受診し

当院を紹介され入院となった。

既往歴：中耳炎の他は特記事項なし

来院時現症：体温 38.1℃，心拍数 98/min，呼吸数 26/min，血圧 98/50 mmHg

心音：整，心雑音なし 呼吸音：清 左右差なし

腹部：平坦，軟であったが，間欠的な腹痛の訴えはあるも圧痛ははっきりしなかった。

会陰部：陰嚢・精巣の疼痛・腫脹・発赤なし

血液検査所見では，CRPは陰性であったが好中球優位（84%）の白血球の増多を認めた。さらにBUNの上昇，尿の濃縮，ケトン体が（4+）と脱水と異化の亢進とを認めた（Table 1）。

腹部レントゲン検査では下行結腸に便塊貯留を認め，大腸ガスの左側腹部への偏位を認めた（Fig. 1）。

入院後，補液にて経過観察を行っていたが，腹痛の改善がみられず，夜から胆汁性嘔吐が出現した。腸回転異常を疑い，入院翌日に腹部造影CTを施行した。本来，上腸間膜動脈（SMA）の右側を並行して走るべき上腸間膜静脈（SMV）が左側に位置しており，腸回転異常症と診断した（Fig. 2A）。さらに尾側のスライスでSMAを中心にSMVが渦を巻いて走行しているwhirlpool signを認めた（Fig. 2B）。これらのことから腸回転異常症に伴う中腸軸捻転と診断し，小児外科にて緊急内視鏡手術を施行した。

術中所見：腹腔鏡下で観察すると，十二指腸と結腸の間にLadd靭帯の形成がみられ，中腸がSMAを中心に反時計回りに720°回転していた（Fig. 3A）。絞扼された中腸の血流障害は認められなかったが，腸管

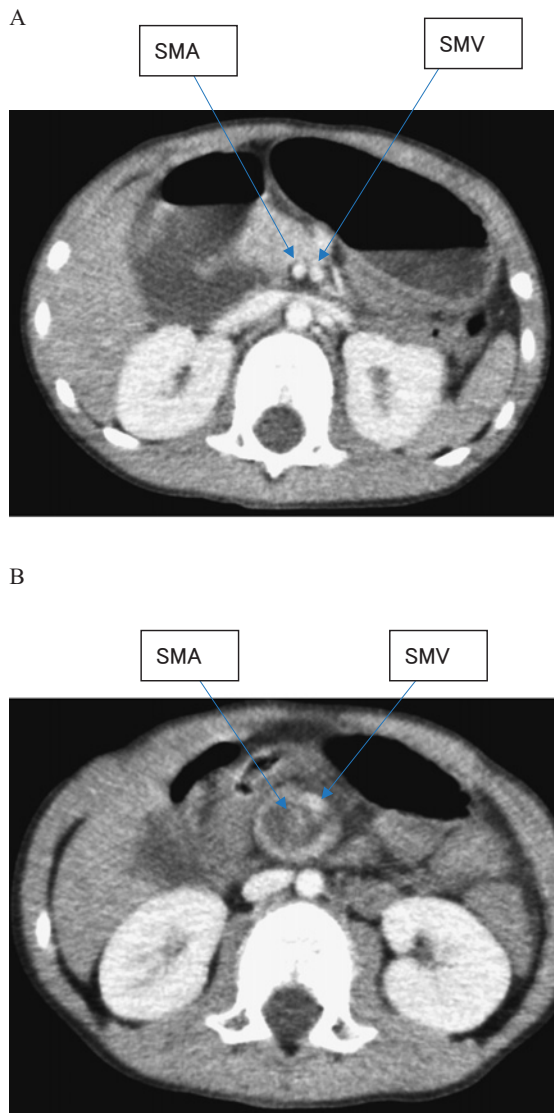


Fig. 2

A Enhanced abdominal computed tomography shows that the positions of the SMA and SMV are reversed left and right (SMV rotation sign).

B Enhanced abdominal computed tomography shows swirling of the SMV around the SMA (whirlpool sign).

膜静脈の怒張は著明であった。そのため腹腔鏡下に中腸の捻転解除した後、Ladd 靭帯を十分切離し、十二指腸から空腸の蛇行を解除し、腸間膜根部を十分に拡張した (Ladd 手術)。さらに十二指腸から空腸起始部を肝下面から右側腹部に位置するように右側腎前面の後腹膜に固定した (Fig. 3B)。合わせて虫垂切除術も施行した。術後経過は良好で術後9日目に退院となった。現在外来で経過を観察しているが、症状の再現は認めていない。

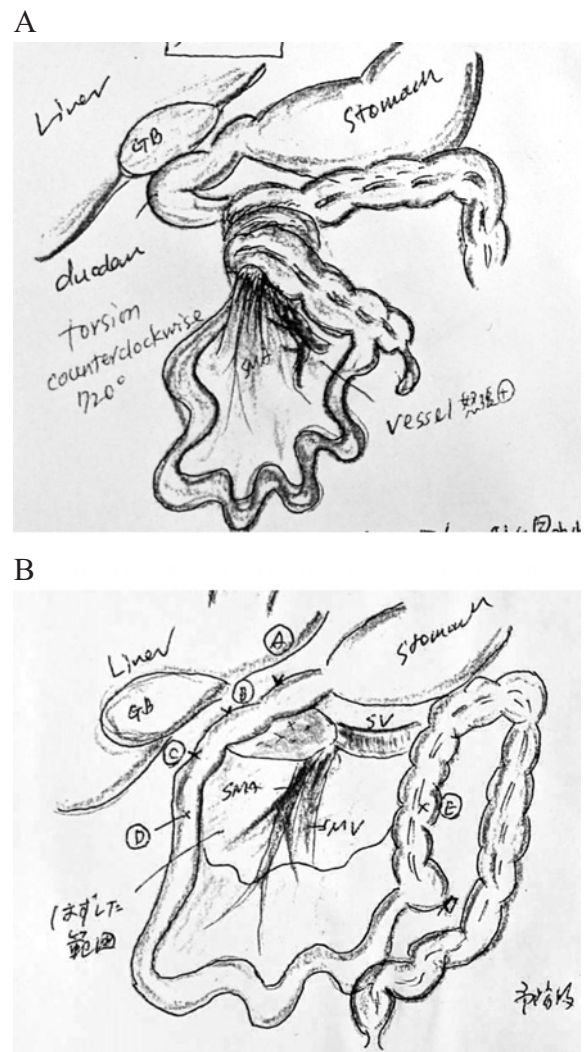


Fig. 3

A The Ladd ligament between the duodenum and the ascending colon is removed, and the midgut volvulus rotated 720 degrees counterclockwise is released.

B After releasing the torsion of the midgut volvulus, the mesenteric root trunk is widened. The duodenal-jejunal junction is returned to the upper right abdominal cavity, and the colon is returned to the left abdominal cavity (Ladd surgery).

Furthermore, the duodenal-jejunal junction (A ~ D) and ascending colon are fixed to the retroperitoneum (E).

考 察

腸回転異常症は、胎生早期に SMA の支配領域である中腸 (十二指腸から横行結腸中部まで) が SMA を中心に反時計回りに 270° 回転して後腹膜に固定される過程で種々の程度で障害されることで生ずる病態の総称である^{1,3}。腸管の回転と固定の異常には大きな幅

があり、本症の病型を明確に分類することは困難で、移行型、中間型が多くみられる。そのため近年では、病態を反映するように nonrotation 型, incomplete rotation 型, incomplete fixation 型の 3 型に区分されるように推奨されている²。nonrotation 型とは、最初の中腸の反時計回りの回転が起こらなかった型で、incomplete rotation 型は正常の 270° の回転が不完全、または方向が逆であることに起因する型である。incomplete fixation 型は、回転はほぼ正常に起こっているが、後腹膜との固定のプロセスが不完全なことに起因する型である。腸回転異常症では Ladd 靭帯による圧迫や中腸軸捻転により、十二指腸での通過障害を起こすことが知られており、中腸軸捻転は腸回転異常の合併症ととらえることができる。

腹部 CT 所見は、腸回転異常では、上腸間膜動静脈の左右の位置の逆転する所見 (SMV rotation sign) がみられ、中腸軸捻転を合併した症例では、SMA を軸に SMV が渦巻き状の走行を呈する所見 (whirlpool sign) が認められ、診断的価値は高いとされている⁶。本症例では腹痛と嘔吐が出現した後、2 日目から胆汁性嘔吐を認め、術中所見と特徴的な CT 所見から nonrotation rotation 型の腸回転異常症から中腸軸捻転をきたしたものと診断した。

腸回転異常症の 64~81% は新生児期に報告され、1 歳以上の年長児では 5~18% と比較的まれである⁷⁻⁹。新生児・乳児期には、胆汁性嘔吐と血便とを発症時の症状として絞扼性腸閉塞を呈し腸管壊死に到るリスクが高い。それに対して、年長児では間欠的な腹痛と非胆汁性嘔吐、便秘、吸収障害など様々な症状で発症することが知られていて、典型的な症状を呈さないことが診断を遅れさせると考えられている^{2-4,9}。この要因として、年長児では慢性軸捻転のように急な虚血が起こりにくく、さらにすでに側副血行路が発達することなどが挙げられている。今回の症例では手術時、側副血行路の発達はみられなかったが虚血による腸管壊死はみられなかったことは、4 歳という年齢的な因子があった可能性はあると思われる。

腸回転異常症に伴う中腸軸捻転に対する手術方法としては、Ladd が報告した、腸間膜の捻転を解除し、回転の軸となる Ladd 靭帯を切離、腸間膜根部を剝離、開大し面にして、十二指腸を腹腔内右側、結腸を腹腔内左側に還納する Ladd 手術¹⁰と、Brennom らが報告した、Ladd 手術に十二指腸を後腹膜に、虫垂を下行結腸に縫合固定する術式 “Bill 手術”¹¹、岩村らが報告した Ladd 手術に加えて十二指腸から空腸起始部を右側腎前面の後腹膜に固定する術式である “Half-

Bill 手術”がある¹²。近年では腹腔鏡下に Ladd 手術が行われるようになり、腸管固定しないため 0~26% に再発のリスクがあり¹³⁻¹⁶、創部の大きさも変わらず腸管固定を追加できる Half-Bill 法が推奨されている¹⁷。本症例も腹腔鏡下手術であったため Half-Bill 手術を施行している。現在外来経過観察中であるが、特に再捻転なく、経過良好である。

結 語

腸回転異常による中腸軸捻転をきたしたまれな幼児の一例を経験した。年長児の腸回転異常では非典型的な症状を呈することがあるため、注意深い診察と画像診断が必要である。

Conflict of Interest : 開示すべき利益相反なし

文 献

1. Snyder WH, Chaffin L: Embryology and pathology of the intestinal tract: presentation of 40 cases of malrotation. *Ann Surg* 1954; 140: 368-380.
2. Spigland N, Brandt ML, Yazbeck S: Malrotation presenting beyond the neonatal period. *J Pediatr Surg* 1990; 25: 1139-1142.
3. Nehra D, Goldstein AM: Intestinal malrotation: Varied clinical presentation from infancy through adulthood. *Surgery* 2011; 149: 386-393.
4. 竜田恭介, 石本健太, 古澤敬子, 古賀義法, 財前善雄: 当科における腸回転異常症の新生児乳児例と年長児例の比較検討. *日小外会誌* 2017; 53: 1004-1008.
5. 荒木俊光, 井上幹大, 大北喜基, 内田恵一, 毛利靖彦, 楠 正人: 外科医が知っておくべき・小腸疾患 手術 腸回転異常. *臨床外科* 2014; 69: 1082-1087.
6. 島貫義久: 腸回転異常と中腸軸捻転. *小児診療* 2017; 80: 1339-1343.
7. Stewart DR, Colodny AL, Daggett WC: Malrotation of the bowel in infants and children: a 15 year review. *Surgery* 1976; 76: 716-720.
8. Ford EG, Senac MO Jr, Srikanth MS, Weitzman JJ: Malrotation of the intestine in children. *Ann Surg* 1992; 215: 172-178.
9. 北河徳彦, 大浜用克, 武 浩志ほか: 年長児における腸回転異常症の診断と治療. *小児外科* 2005; 37: 803-808.
10. Ladd WE: Congenital Obstruction of the duodenum in children. *N Engl J Med* 1932; 206: 277-282.
11. Brennom WS, Bill AH: Prophylactic fixation of the intestine for midgut nonrotation. *Surg Gynecol Obstet* 1974; 138: 181-184.
12. 岩村喜信, 青山興司, 久守孝司ほか: 腸回転異常症術後再軸捻転症. *小児外科* 2000; 32: 1168-1172.
13. Biko DM, Anupindi SA, Hanhan SB, Blinman T, Markowitz RI: Assessment of recurrent abdominal symptoms after Ladd procedure: clinical and radiographic correlation. *J Pediatr Surg* 2011; 46: 1720-1725.
14. Hagendoorn J, Vieira-Travassos D, van der Zee D:

- Laparoscopic treatment of intestinal malrotation in neonates and infants: retrospective study. *Surg Endosc* 2011; 25: 217–220.
15. Kalfa N, Zamfir C, Lopez M, et al: Conditions required for laparoscopic repair of subacute volvulus of the midgut in neonates with intestinal malrotation: 5cases. *SLIrg Endosc* 2004; 18: 1815–1817.
 16. Fraser JD, Aguayo P, Sharp SW, Ostlie DJ, St Peter SD: The role of laparoscopy in the management of malrotation. *J Surg Res* 2009; 156: 80–82.
 17. 秋山卓士, 向井 亘, 佐伯 勇, 今治玲助: 当院における腸回転異常症例の検討 手術方法について. *小児外科* 2016; 48: 755–758.

(受付: 2021年5月11日)

(受理: 2021年8月2日)

日本医科大学医学会雑誌は、本論文に対して、クリエイティブ・コモンズ表示 4.0 国際 (CC BY NC ND) ライセンス (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>) を採用した。ライセンス採用後も、すべての論文の著作権については、日本医科大学医学会が保持するものとする。ライセンスが付与された論文については、非営利目的の場合、元の論文のクレジットを表示することを条件に、すべての者が、ダウンロード、二次使用、複製、再印刷、頒布を行うことが出来る。