

妊娠分娩を契機に発症した大腸全摘+回腸囊肛門（管）吻合術後 afferent limb syndrome に対する腹腔鏡下手術の1例

久保 祐人¹⁾ 水島 恒和¹⁾ 三吉 範克¹⁾ 高橋 秀和¹⁾
原口 直紹¹⁾ 畑 泰司¹⁾ 松田 宙¹⁾ 土岐祐一郎¹⁾
森 正樹¹⁾

¹⁾大阪大学大学院医学研究科消化器外科学

潰瘍性大腸炎（ulcerative colitis；以下、UC と略記）に対する大腸全摘・回腸囊肛門（管）吻合術後は腸閉塞の合併頻度が高く、特有な原因として回腸囊口側腸管の屈曲・捻転による afferent limb syndrome（以下、ALS と略記）が報告されている。本邦での報告例はまれであり、妊娠・分娩を契機に発症した報告はない。症例は25歳の女性で、挙児希望を考慮し、内科的治療が不良のUCに対し、大腸全摘・回腸囊肛門管吻合術を施行した。術後42か月目に自然分娩で出産し、分娩後3か月目に腸閉塞を発症した。保存的加療で改善するも、繰り返し発症するため、癒着を疑い腹腔鏡手術の方針となった。術中所見で癒着はなく、回腸囊の口側腸管が骨盤腔に落ち込み屈曲していた。ALSと診断し、回腸囊口側腸管を腹壁に吊り上げて固定した。本症例は分娩後に子宮が縮小してできた骨盤内の空間で回腸囊が移動し、輸入脚に強い屈曲をもたらしたことがALSの原因と考えられた。

キーワード：回腸囊肛門（管）吻合術, afferent limb syndrome, 腹腔鏡下

はじめに

潰瘍性大腸炎（ulcerative colitis；以下、UC と略記）に対する絶対的手術適応は①大腸穿孔・大量出血・中毒性巨大結腸症、②重症型、劇症型で内科的治療が無効な例、③癌/high grade dysplasia（UC-IV）であり、①②は（準）緊急手術の適応である。一方、相対的手術適応としては、（1）内科的治療で効果がなく、QOL 低下例、内科的治療で重症の副作用が発現、または発現する可能性が高い難治例、（2）内科的治療に抵抗する壊疽性膿皮症などの腸管外合併症、（3）狭窄、瘻孔などの大腸合併症、low-grade dysplasia（UC-III）のうち癌合併の可能性が高い例などが挙げられる¹⁾。タクロリムスや抗 TNF- α 抗体製剤などの薬物療法の進歩に伴い、手術症例の割合も変化してきており、難治例は減少してきているが、最近では長期経過例の増加に伴い、癌合併症例が増加しており、今後も癌/dysplasia の手術症例は増加することが予想されている^{2)~4)}。

UC に対する術式は大腸全摘（total proctocolectomy；以下、TPC と略記）・回腸囊肛門吻合術（ileoanal anastomosis；以下、IAA と略記）であり、残存腸管からの発癌の可能性はあるものの漏便は少ない回腸囊肛門管吻合術（ileal anal canal anastomosis；以下、IACA と略記）も同様に標準術式である。術式はほぼ確立されており、家族性大腸腺腫症（familial adenomatous polyposis；以下、FAP と略記）などでも同様の手術が行われている⁵⁾。近年、開腹症例は減少し、小開腹や腹腔鏡補助下での手術が増加傾向である²⁾。

Ileal pouch anal anastomosis：IAA+IACA（以下、IPAA と略記）術後に腸閉塞を起こす確率は術後76か月

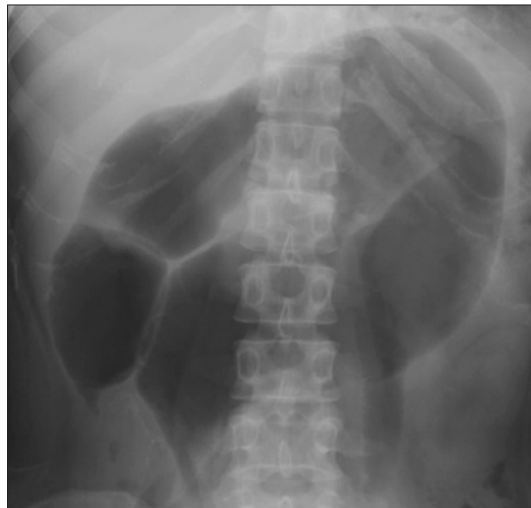


Fig. 1 Abdominal X ray showed a small bowel distension in the proximal side of the J pouch.

間で 25.5%と高く、手術操作が腹腔内から骨盤内まで広範囲であり、分割手術を選択することも多いことが原因として報告されており⁶⁾、また Mizushima ら⁷⁾は UC に対して TPC・IPAA 術後早期 (stoma 造設から閉鎖までの期間) の腸閉塞の合併症頻度を 22.8%と報告している。1997 年に Read ら⁸⁾が IPAA 術後の腸閉塞に特有の原因として、回腸囊口側腸管の屈曲および捻転による通過障害 (afferent limb syndrome; 以下、ALS と略記) を報告している。ALS は一時的 stoma を閉鎖した後に発症するが、報告も少なく、リスクや原因については不明である。本邦で、UC における TPC・IPAA/IACA 術後に ALS を発症した報告はまれであり、加えて妊娠・分娩を契機に ALS を発症した報告はない。

症 例

患者：25 歳，女性

主訴：繰り返す腸閉塞

現病歴：内科的コントロール不良の UC に対し、挙児希望もあることから、2013 年 11 月に HALS-TPC・IACA+一時的回腸瘻造設術を施行した。術後経過は良好で、2014 年 6 月に一時的回腸瘻を閉鎖した。その後は 1 日 6~8 行の泥状便を認め、排便状況は良好であった。

2016 年 5 月に第 1 子 (3,038 g) を自然分娩後、2016 年 9 月に腸閉塞を発症した。腹部 XP にて J pouch より口側の小腸に拡張を認めた (Fig. 1)。腹部 CT では J pouch 輸入脚付近を機転とした小腸捻転が疑われた (Fig. 2a, b)。下部消化管内視鏡 (colon scope; 以下、CS と略記) を施行したところ、捻転部位は通過可能であった。脱気処置のみ行い、改善が認められた。しかし、2017 年 6 月までに同様の腸閉塞を計 3 回認めた。全て CS による脱気処置のみで改善が認められたが、短期間に繰り返す腸閉塞であり、2018 年 1 月に待機的手術の方針となった。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

内服歴：ミヤ BM ロペミンカプセル

アレルギー歴：特記すべき事項なし。

血液検査所見：炎症反応は軽度上昇 (WBC 7,960, CRP 0.54 mg/dl) していた。その他、特記すべき事項なし。

下部消化管内視鏡・造影検査所見：J pouch 内の粘膜は正常で、J pouch の最も口側の部位は屈曲が強く、造影剤の口側から肛門側への流出もやや不良であった (Fig. 3a~c)。

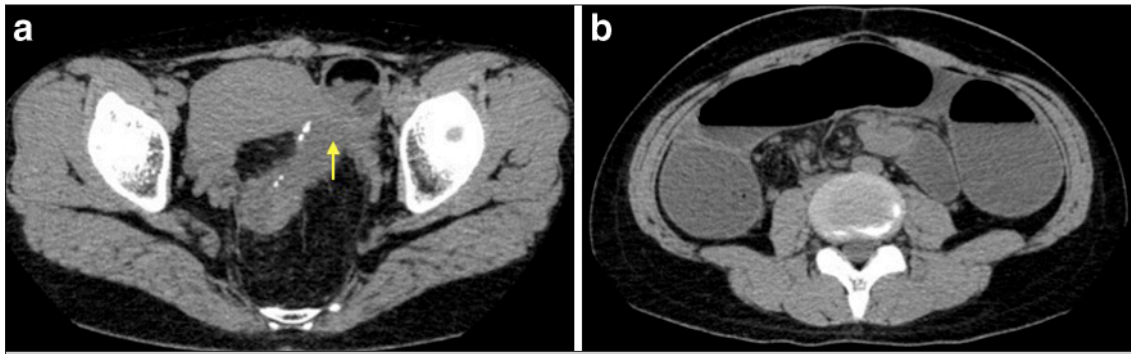


Fig. 2 a, b: Contrast CT showed a stenosis around the afferent limb of the J pouch (arrow) and a distension and fluid retention in the proximal small intestine.

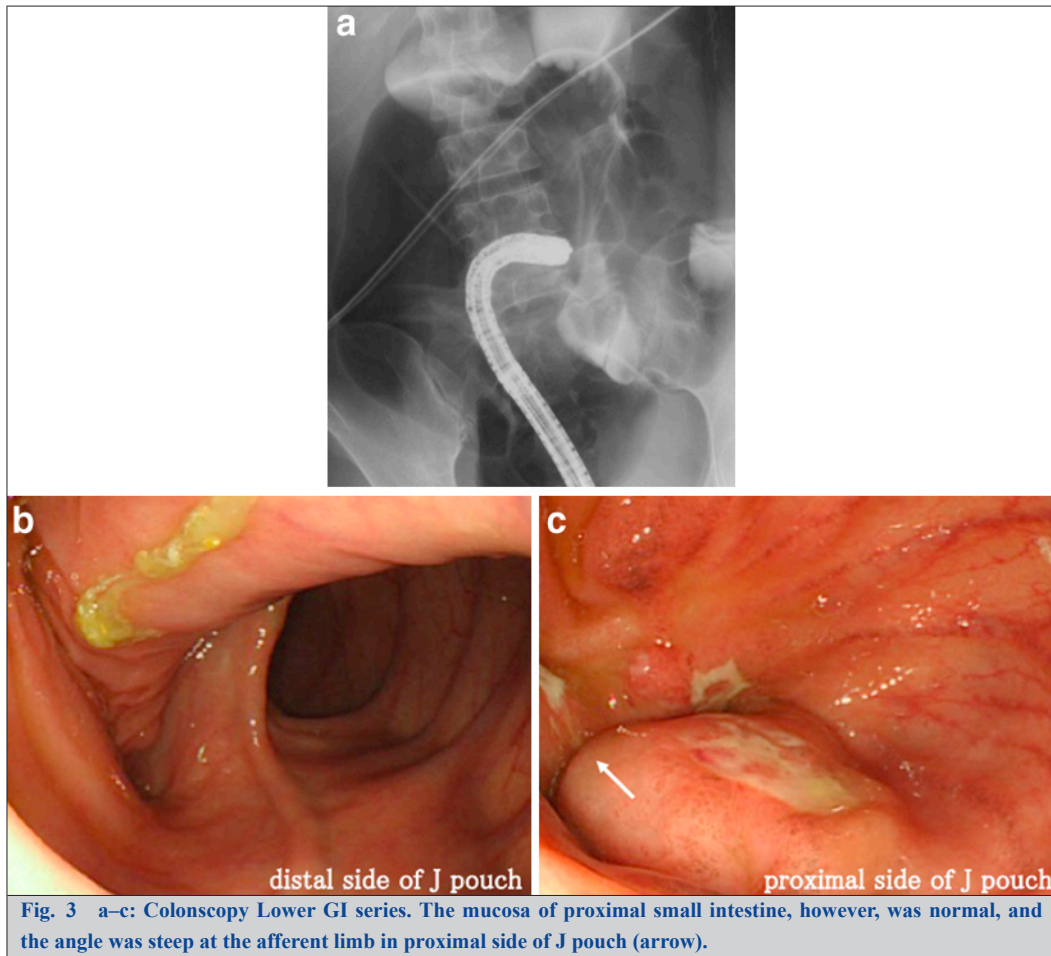


Fig. 3 a-c: Colonoscopy Lower GI series. The mucosa of proximal small intestine, however, was normal, and the angle was steep at the afferent limb in proximal side of J pouch (arrow).

手術所見：臍部を 3 cm 切開して，Lap Protector と EZ アクセスを装着した．単孔式腹腔鏡下に腹腔内を検索したところ，回腸囊輸入脚と回腸瘻閉鎖部の間の腸管約 30 cm が著明に拡張していた．小開腹創から全小腸を検索したが，明らかな癒着は認めなかった．骨盤内の回腸囊周囲にも腸閉塞の原因となる癒着は認められず，輸入脚が骨盤内に落ち込むことにより，回腸囊腸管の屈曲が腸閉塞の原因（ALS）である可能性が考えられた．輸入脚部分を右側腹部に吊り上げて，3-0 Vicryl で 6 針固定した．経肛門的に回腸囊内に 10 mm デュープルドレインを留置し，閉腹し，手術終了とした（Fig. 4, 5）．

術後経過：術後 8 日目に経過良好で退院した．術後 12 か月経過し腸閉塞の再発は認められていない．

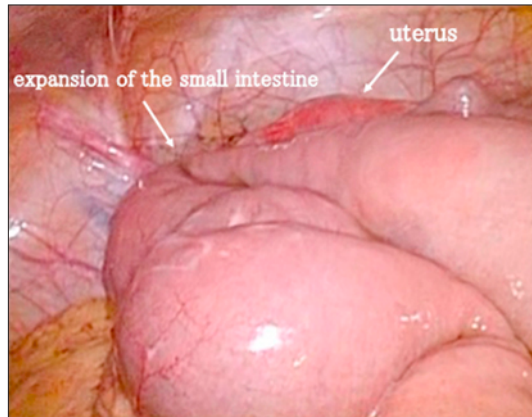


Fig. 4 In the pelvic space, expansion of the small intestine from afferent limb was seen.

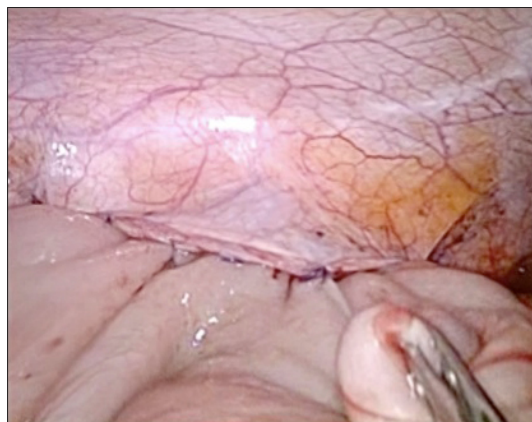


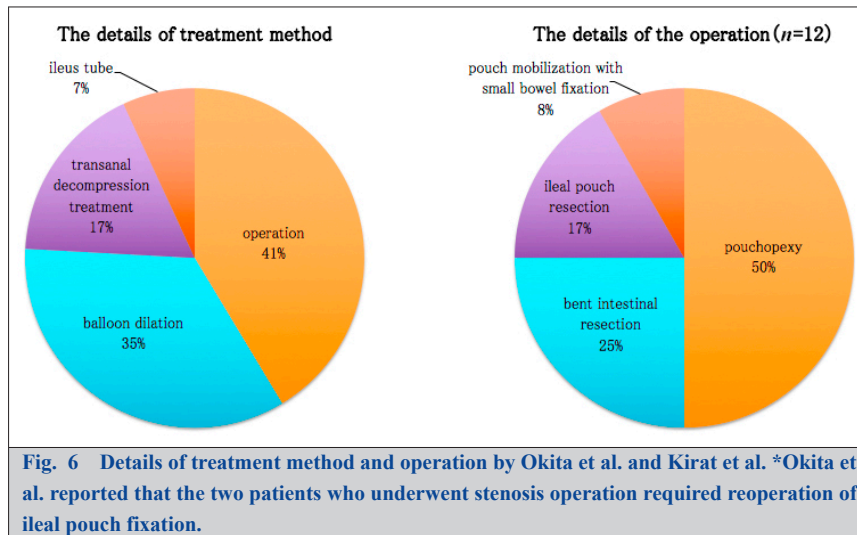
Fig. 5 The afferent limb was fixed on the right upper abdominal wall.

考 察

TPC・IPAA 術後に特有な腸閉塞の原因として、ALS がある。Shen ら⁹⁾は、ALS の定義を回腸囊口側の afferent limb における強い屈曲・脱出・重積・捻転による腸閉塞としている。Shen ら⁹⁾の報告と対照に、Read ら⁸⁾は ALS の発症機序を回腸囊と仙骨の間で圧迫されたことにより腸閉塞が引き起こされたと述べている。また、Shen ら⁹⁾の報告では、IPAA 術後に腸閉塞を発症した患者 122 例中 48 例に手術を行い、その内 6 例が ALS を確認している。

Kirat ら¹⁰⁾は、ALS について临床上は断続的な閉塞症状など腸閉塞の一部の症状が特徴であり、内視鏡および腹部画像によって診断できると述べている。治療は内視鏡下バルーン拡張または外科的介入がしばしば必要とされ、外科的療法はより根治的であると報告している。Kirat ら¹⁰⁾の報告では、ALS の患者 8 例に対して手術を行い、3 例が回腸囊口側の afferent limb における屈曲した腸管を切除、2 例が回腸囊固定術、2 例が回腸囊切除、1 例が口側腸管の固定による回腸囊の授動を施行したと述べているが、術後再発に関しては報告していない。

Okita ら¹¹⁾は ALS について、ALS と異なる腸閉塞と比較し、臨床的特徴についてさらに言及しており、治療に関しては、経肛門減圧処置および手術が施行される頻度が高いと報告している。術式の選択としては、回腸囊固定術が ALS の再発も少なく、有用な方法であると考えられている (Fig. 6)。回腸囊固定術後に ALS が再発した 2 例もあるが、原因として骨盤内に固定された部位が新たな屈曲部位となり再発したと



考えられている。

本症例は、HALS-TPC・IACA・一時的回腸瘻造設術を施行し、術後7か月目で回腸瘻閉鎖を施行し、その後腸閉塞の発症はなかったが、出産3か月後(術後2年9か月)に腸閉塞を発症し、その後腸閉塞を繰り返して発症した。Walkerら¹²⁾は、FAPに対してIAAを施行した妊娠36週の腸閉塞患者に分娩誘発を行い、分娩後に腸閉塞は解除されたと報告しており、回腸嚢が骨盤底に位置するため解剖学的に圧迫を受けやすく、妊娠により腸閉塞の危険性が増加する可能性がある」と結論している。本症例においては、妊娠・分娩するまでは腸閉塞を発症しておらず、妊娠中、胎児の成長に伴い子宮が腫大し、分娩後、子宮が縮小してできたspaceに回腸嚢が移動したために、afferent limbに強い屈曲をもたらしたことが原因で、腸閉塞が発症した可能性が考えられた。本邦では、UCに対するTPC・IPAA術後のALSを発症した症例は医学中央雑誌で1964年から2018年4月の期間で「潰瘍性大腸炎」、「afferent limb syndrome」をキーワードとして検索したところ(会議録除く)、本症例を除き8例のみ報告されている。しかし、妊娠・出産を契機にALSを発症した症例は報告されていない(Table 1)¹¹⁾¹³⁾¹⁴⁾。

FAPにおけるIPAA術後に対してALSが発症する原因は、UCと同様に輸入脚の屈曲・捻転であり、FAPがALSを発症するリスクはUCと同様であると考えられる。しかし、医学中央雑誌で1964年から2018年4月の期間で「家族性大腸腺腫症」、「afferent limb syndrome」をキーワードとして検索したところ、報告例はなかった。

Okitaら¹¹⁾の報告によると、TPC・IPAA術後のALSに対する術式としては回腸嚢固定術が有効である。初回の術式として全て開腹での施行であった。回腸嚢固定術後にALSが再発した例もあるが、原因として骨盤内に固定された部位が新たな屈曲部位となり再発したと考えられている。

本症例では初回の術式として腹腔鏡下を選択し、術後12か月経過し無再発であることから、腹腔鏡下での施行も有効であると考えられた。Readら⁸⁾は、再発性の腸閉塞の認められたIPAA術後患者にafferent limbでの通過障害を疑うべきと述べており、本症例においても腸閉塞を4回繰り返しており、術前にALSを鑑別として挙げる必要があった。本症例では、回腸瘻閉鎖後は腸閉塞を認めなかったが、分娩後4か月が経過してから初回の腸閉塞を発症し、分娩とALSが関連しているものと考えられた。分娩後とALSの因果は、分娩後、子宮が縮小してできた骨盤内のspaceに回腸嚢が移動したために、輸入脚に強い屈曲や捻転をもたらしたことが原因で、ALSを発症することが考えられた。

今後、IPAA術後に結婚・妊娠・出産する女性患者も増加することが予想される。UCとFAPは若年者に多く発症し、特に女性において妊娠中に加えて、妊娠後もALSの発症に注意する必要があると考えられた。

Case	Author/ Year	Sex	Age* ¹	Post- operative pregnancy history	Period (month)* ²	During the initial surgery diagnosis	Operation	Postoperative observation period (month)* ³	Postoperative recurrence
1	Okita ¹¹⁾ / 2016	Female	61	no	92	Adhesions ileus	①Adhesiolysis ②Adhesiolysis ③Stenosis operation ④Pouchopexy	55	no
2	Okita ¹¹⁾ / 2016	Male	61	—	75	—	—	—	—
3	Okita ¹¹⁾ / 2016	Female	41	no	6	ALS	①Pouchopexy ②Pouchopexy +Stenosis operation ③Pouchopexy ④Pouchopexy (Laparoscopy)	7	yes
4	Okita ¹¹⁾ / 2016	Female	40	no	60	ALS	①Pouchopexy	43	no
5	Okita ¹¹⁾ / 2016	Male	28	—	16	—	—	—	—
6	Okita ¹¹⁾ / 2016	Male	27	—	51	ALS	①Pouchopexy ②Pouchopexy (Laparoscopy)	7	yes
7	Noguchi ¹³⁾ / 2016	Female	45	—	48	ALS	①Pouchopexy ②Stenosis operation ③Pouchopexy	—	yes
8	Shimada ¹⁴⁾ / 2016	Female	46	—	15	ALS	①Pouchopexy	7	no
9	Our case	Female	25	yes	33	ALS	①Pouchopexy (Laparoscopy)	2	no

*¹Age at the time of IPAA operation. *²The period until the onset of intestinal obstruction after stoma closure. *³Ileum fixed postoperatively.

利益相反：なし

文献

- 1) 鈴木 康夫, 松井 敏幸, 中村 志郎, 樋渡 信夫, 杉田 昭, 平田 一郎, ほか. 難治性炎症性腸管障害に関する調査研究. 平成 28 年度分担研究報告書 別冊. 東京: 厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業; 2017. p. 12-3.
- 2) 池内 浩基, 内野 基, 松岡 宏樹, 坂東 俊宏, 平田 晃宏, 竹末 芳生, ほか. 潰瘍性大腸炎に対する外科治療の進歩と現状. 日本大腸肛門病学会雑誌. 2011;64:829-33.
- 3) 池内 浩基, 内野 基. 潰瘍性大腸炎外科的治療の最前線. 日本消化器病学会雑誌. 2016;113:424-9.
- 4) 池内 浩基, 内野 基, 坂東 俊宏, 蝶野 晃弘, 佐々木 寛文, 堀尾 勇規, ほか. 潰瘍性大腸炎に対する内科・外科の連携と外科的治療の最前線. 日本大腸肛門病学会雑誌. 2017;70:593-600.
- 5) de Zeeuw S, Ahmed Ali U, Donders RA, Huetting WE, Keus F, van Laarhoven CJ. Update of complications and functional outcome of the ileo-pouch anal anastomosis: overview of evidence and meta-analysis of 96 observational studies. Int J Colorectal Dis. 2012;27:843-53.
- 6) Aberg H, Pahlman L, Karlbom U. Small-bowel obstruction after restorative proctocolectomy in patients with ulcerative colitis. Int J Colorectal Dis. 2007;22:637-42.
- 7) Mizushima T, Kameyama H, Watanabe K, Kurachi K, Fukushima K, Nezu R, et al. Risk factors of small bowel obstruction following total proctocolectomy and ileal pouch anal anastomosis with diverting loop-ileostomy for ulcerative colitis. Ann Gastroenterol Surg. 2017;1:122-8.
- 8) Read TE, Schoetz DJ Jr, Marcello PW, Roberts PL, Collier JA, Murray JJ, et al. Afferent limb obstruction complicating ileal

- pouch-anal anastomosis. *Dis Colon Rectum*. 1997 May;40(5):566-9.
- 9) Shen B, Remzi FH, Lavery IC, Lashner BA, Fazio VW. A proposed classification of ileal pouch disorders and associated complications after restorative proctocolectomy. *Clin Gastroenterol Hepatol*. 2008;6:145-58.
 - 10) Kirat HT, Kiran RP, Remzi FH, Fazio VW, Shen B. Diagnosis and management of afferent limb syndrome in patients with ileal pouch-anal anastomosis. *Inflamm Bowel Dis*. 2011 Jun;17(6):1287-90.
 - 11) Okita Y, Araki T, Kawamura M, Kondo S, Inoue M, Kobayashi M, et al. Clinical features and management of afferent limb syndrome after ileal pouch-anal anastomosis for ulcerative colitis. *Surg Today*. 2016 Oct;46(10):1159-65.
 - 12) Walker M, Sylvain J, Stern H. Bowel obstruction in a pregnant patient with ileal pouch-anal anastomosis. *Can J Surg*. 1997;40:471-3.
 - 13) 野口 智史, 近藤 哲, 川村 幹雄, 大北 喜基, 荒木 俊光, 毛利 靖彦, ほか. 潰瘍性大腸炎に対する大腸全摘・J型回腸囊肛門吻合術後の afferent limb syndrome の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌*. 2016 Sep;77(9):2354.
 - 14) 嶋田 徳光, 大毛 宏喜, 矢野 雷太, 繁本 憲文, 上神 慎之介, 渡谷 祐介, ほか. 大腸全摘術後の Afferent Limb Syndrome の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌*. 2016 Oct;77:550.

CASE REPORT

Laparoscopic Surgery for Afferent Limb Syndrome after Total Proctocolectomy and Ileal Pouch Anal Anastomosis Occurring after Pregnancy Delivery

Yuto Kubo¹⁾, Tsunekazu Mizushima¹⁾, Norikatsu Miyoshi¹⁾, Hidekazu Takahashi¹⁾,
Naoaki Haraguchi¹⁾, Taishi Hata¹⁾, Chu Matsuda¹⁾, Yuichiro Doki¹⁾ and
Masaki Mori¹⁾

¹⁾Department of Gastroenterological Surgery, Graduate School of Medicine, Osaka University

Small bowel obstruction (SBO) often occurs as a postoperative complication after total proctocolectomy (TPC) and ileal pouch anal anastomosis (IPAA) for ulcerative colitis (UC). Afferent limb syndrome (ALS) is reported as a specific cause of SBO due to kinking and torsion at the proximal intestinal tract of the ileal pouch. Reported cases of ALS in Japan is rare and there have been no reports of ALS occurring after pregnancy delivery. Here, we report a case of a 25-year-old woman who underwent TPC and IPAA for UC due to refractory to medical treatments because she hoped for a future pregnancy. She gave birth spontaneously at 42 postoperative months, and a SBO developed 3 months after parturition and improved with conservative treatment. However, the symptoms repeated for a short duration, thus, we suspected intra-peritoneal adhesion as the cause of the SBO and decided to perform a laparoscopic operation. In operative findings, there was no adhesion in the abdominal cavity and the intestine of the proximal side from the ileal pouch fell into the pelvic cavity, causing kinking to the intestine. Therefore, ALS was diagnosed and we raised the proximal intestinal tract and stitched it to the abdominal wall. In this case, we speculated the ileal pouch moved to the pelvic cavity created by the contraction of the pregnant uterus after parturition. As a result, the afferent limb was severely kinked and considered to be the cause of ALS.

Key Words: ileal pouch anal anastomosis, afferent limb syndrome, laparoscopic

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2019;52(9):536-543]

Reprint requests: Yuto Kubo Department of Gastroenterological Surgery, Graduate School of Medicine, Osaka University
2-2 E2 Yamadaoka, Suita, 565-0871 JAPAN

Accepted: April 24, 2019