

症例報告

完全内臓逆位症を伴う胆嚢腺筋症の腹腔鏡下胆嚢摘出術の1例

多根総合病院 救急科・内科¹, 外科²

朴 将輝¹ 柳 英雄¹ 南原 幹男² 山口 拓也²
 廣岡 紀文² 城田 哲哉² 森 琢児² 小川 稔²
 小川 淳宏² 門脇 隆敏² 渡瀬 誠² 刀山 五郎²
 丹羽 英紀² 安部 嘉男¹

要 旨

症例は69歳女性, 以前より完全内臓逆位症を指摘されていた。脂質異常症の治療で通院中の医療機関での定期検査の腹部エコーにて胆嚢底部に径12mm大の腫瘤像を認めたため, 精査加療目的に当院紹介となった。当院での術前検査では明らかな悪性所見を示唆するものではなく, 耐術能も問題なかったため, 腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した。内臓逆位症では臓器・脈管の位置関係が通常と鏡像関係にあるのみでなく, 血管や胆道の奇形を伴う頻度の高いことが報告されており, これらを考慮して慎重に手術を進めた。本症例では胆嚢動脈の走行が通常と異なっていた。手術時間は65分。術後病理所見に基づく診断は胆嚢腺筋症であった。完全内臓逆位症は胸腹部臓器の全てが逆転する稀な先天性の内臓位置異常であるが, 臓器の逆位や脈管の奇形を想定し, 術者の配置や穿刺部位を適切に調整した結果, 安全に手術を行い得た。

Key words : 完全内臓逆位 ; 腹腔鏡下胆嚢摘出術 ; 胆嚢腺筋症

はじめに

内臓逆位は先天性の内臓の位置異常で, 胸腹部内臓器が正常と左右逆位をとる。本疾患は胸腹部臓器のすべてが逆転する完全内臓逆位と, 一部の臓器のみ逆転する部分内臓逆位とに分類され, 前者と後者の比は4:1と前者が多く, 完全内臓逆位の頻度は5,000~10,000人に1人とされている。内臓逆位そのものに病的意義はないものの, 臓器や脈管の位置関係が通常と鏡像関係にあるのみでなく, 血管や胆道などの奇形を伴う頻度が通常よりも高いことが報告されており, 外科的手術を行う際にはこれらを考慮して慎重に進める必要がある。

今回, 完全内臓逆位症を伴う胆嚢腺筋症に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術(以下, ラパコレ)を行っ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

患者: 69歳 女性

主訴: 自覚症状なし。腹部エコー検査上胆嚢底部に腫瘤像あり。

併存症: 完全内臓逆位症, 高脂血症

既往歴: 67歳時 胃潰瘍
16歳頃 肺結核

手術歴: 40年前に卵管結紮術施行

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 高脂血症でかかりつけ医受診の際, 定期検査の腹部エコーで胆嚢底部に径12mm大の腫瘤像を認めたため, 精査加療のため2010年11月に当院紹介受診となった。

当院初診時現症: 意識清明, 血圧102/64 mmHg, 脈拍77回/分(整), 体温36.2℃

身体所見: 身長161.9 cm, 体重56 kg(急な体重減)

表1 血液検査所見（当院初診時）

■血算			
WBC	3800 / μ l	LDH	205 IU/l
好中球	45.2 %	ALP	166 IU/l
リンパ球	46.5 %	γ -GTP	15 IU/l
単球	4.4 %	AMY	80 IU/l
好酸球	2.9 %	T-Cho	209 mg/dl
好塩基球	1.0 %	TG	84 mg/dl
RBC	441 万 / μ l	BUN	14.5 mg/dl
Hb	13.3 g/dl	Cre	0.81 mg/dl
Ht	39.5 %	Na	144 mEq/l
Plt	12.8 万 / μ l	K	4.0 mEq/l
		Cl	107 mEq/l
■生化学			
TP	7.0 g/dl	血糖	85 mg/dl
Alb	4.5 g/dl	CRP	0.08 mg/dl
T-Bil	0.6 mg/dl	■腫瘍マーカー	
D-Bil	0.1 mg/dl	CEA	0.7 ng/ml
AST	24 IU/l	CA19-9	5.4 U/ml
ALT	16 IU/l		

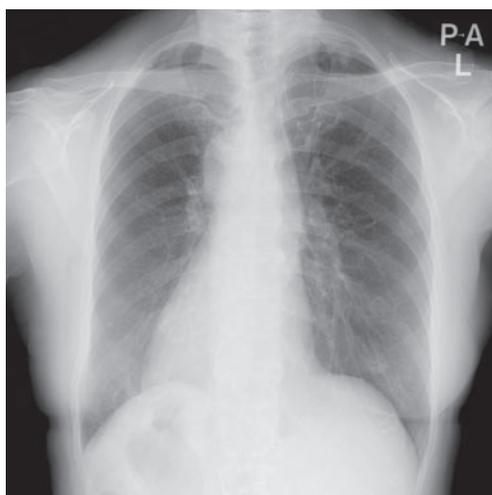


図1 胸部単純レントゲン写真

少などなし), 腹部 平坦・軟, 圧痛なし. 腫瘍触知せず. 眼瞼・眼球結膜に黄疸や貧血所見なし

検査所見

入院時血液検査(表1): リンパ球の比率が上昇し血小板が軽度低下している他に特記すべき異常なく, 腫瘍マーカーの上昇も認めなかった.

胸部単純レントゲン(図1): 右胸心を認め, 胃泡は右横隔膜下にみられており, 横隔膜の高さは左側に比して1/2肋間高い.

腹部エコー検査(図2): 胆嚢底部に局限した, 壁肥厚を伴う10 mm 強の腫瘤を認め, 壁内には一部高

輝度な領域(図中↓)と嚢胞様の領域(図中↑)が混在していた.

DIC-CT 検査所見(図3, 4): 胆道系は良好に造影され, 拡張認めなかった. 胆嚢内には造影欠損像認め, 部位は底部でありエコー検査での腫瘤像と一致していた. またリンパ節の有意な腫大は認めなかった. 胆道系の走行は, 鏡面像となっている以外に明らかな異常はなかった.

以上より, 明らかな悪性を示唆する所見は認めなかったが, 10 mm を超える胆嚢腫瘍であり, 悪性を完全に否定できず, 完全内臓逆位症に合併した胆嚢底部の腫瘤に対してラパコレを施行することとした.

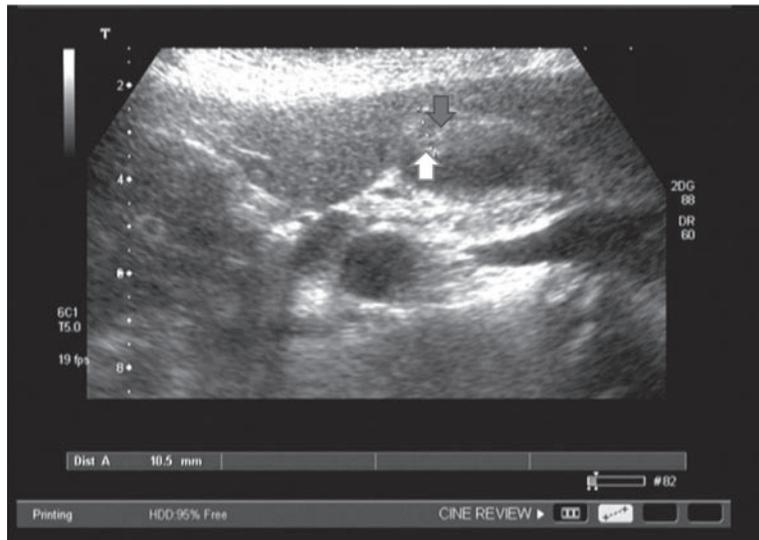


图 2 腹部超音波検査

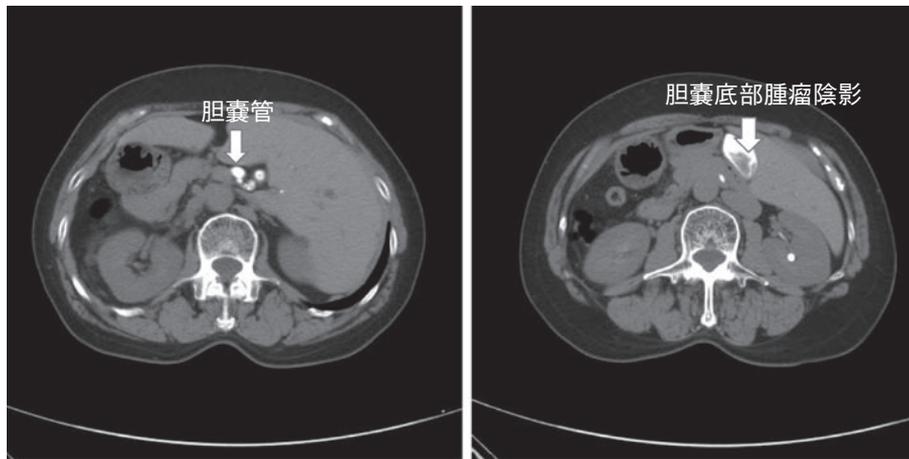


图 3 DIC-CT 検査

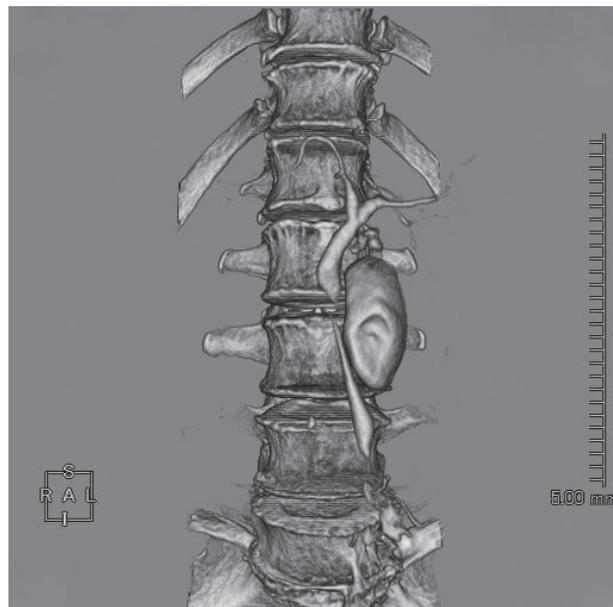


图 4

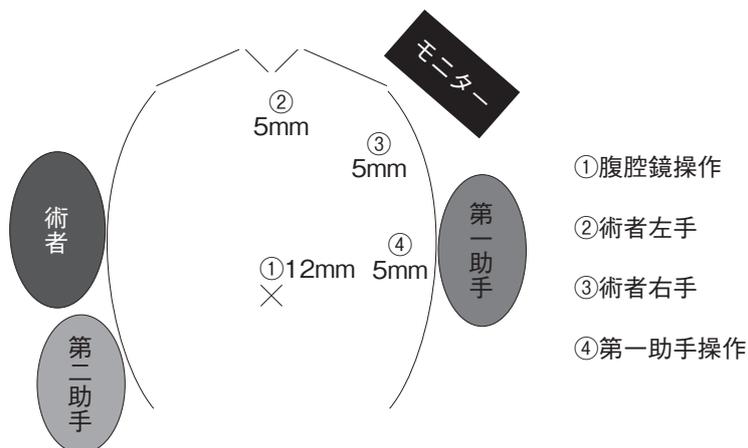


図5 トロカール挿入位置

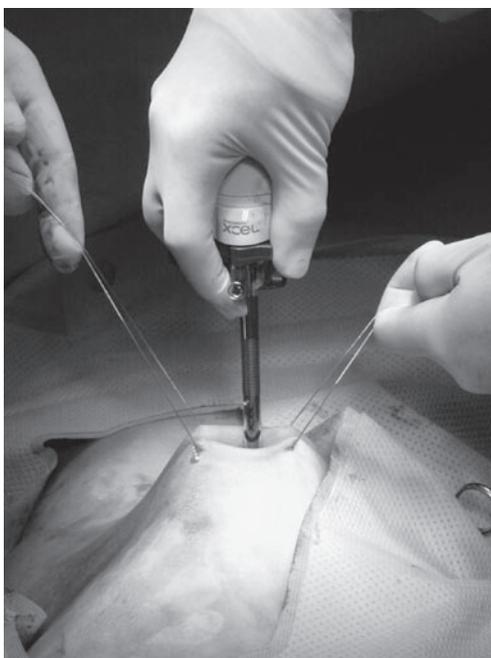


図6 吊り上げ法によるトロカール挿入

手術所見

本症例では左右逆位となることに合わせて、術者や手術器具を通常とは鏡面関係に配置した(図5)。但しメインの剥離操作は左手ではなく右手で行っている。即ち、通常術者は患者の右側に立つところを左側に立ち、左手でタッピンしながら右手でクリップする形の操作法で手術を行った。

手術の際のトロカール挿入位置も、通常とは左右対称に配置。第一穿刺は臍上に径12mmのポートを吊り上げ法にて挿入した(図6)。第一穿刺部位から腹腔鏡を挿入して腹腔内を観察し、通常とは逆の左側に肝臓、右側に胃を確認。腹腔内には腹水などを認めず炎

症や癒着像もなかった。続いて胆嚢底部を頭側に持ち上げ、総胆管、胆嚢管、胆嚢頸部を確認。臓器は完全逆位であるが、胆管の走行異常は認めなかった(図7a)。その後、胆嚢管を露出させ剥離を行った。この際に通常と異なり、患者の左側外方を走行し胆嚢に流入する胆嚢動脈を認めた(図7b)。続いて胆嚢管、胆嚢動脈をそれぞれ切離したが、胆嚢動脈は右手で中枢側へクリッピングを行い切除。胆嚢管の処理は、右手操作の視認がやや不良であったため、クリッピングおよび切除を左手で行った。最後に胆嚢を肝床部より剥離して摘出し手術終了した。手術時間は65分、出血量は10mlであった。

摘出標本(図8)：胆嚢底部に、表面平滑で中膜筋

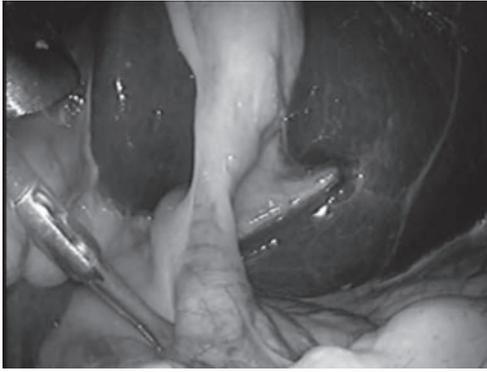


図 7 a

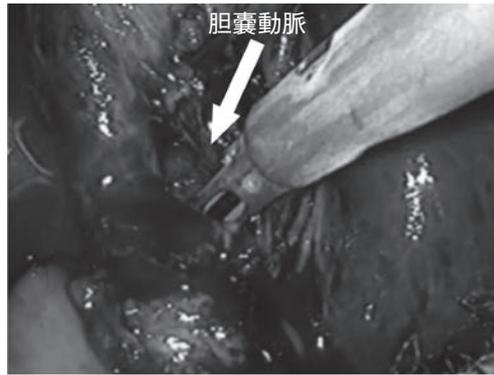


図 7 b

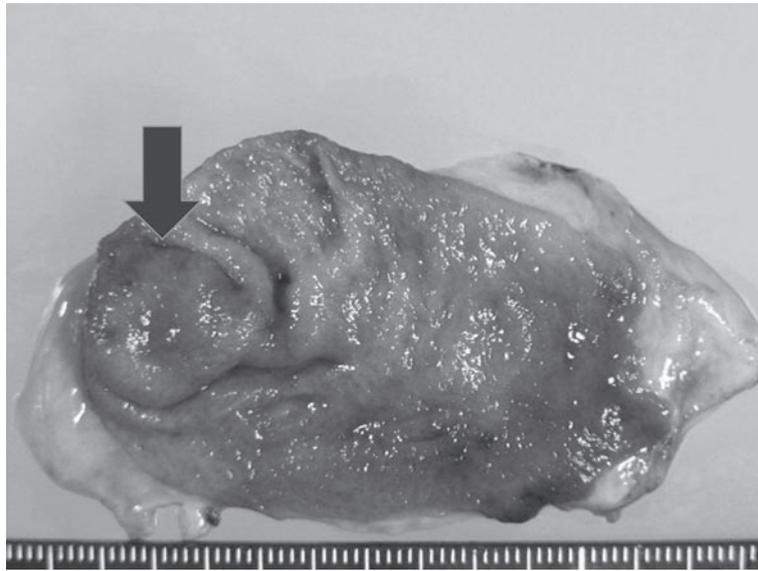


図 8

層部の腫大した 15 mm × 15 mm 大の腫瘤を認め、胆嚢内には 1～2 ミリ大の黒色結石を複数認めた。病理診断の結果は胆嚢腺筋症であり、悪性所見は認めなかった。術後経過は良好で、術後 4 日目に退院し術後 7 日目の外来フォローでも経過順調であった。

考 察

内臓逆位症は胸腹部内臓器が正常の位置に対して左右逆の鏡面的位置関係にある先天性の内臓の位置異常である。本疾患は全ての臓器が逆転する完全内臓逆位と、一部の臓器のみ逆転する部分内臓逆位とに分類され、前者と後者の比は 4:1 と前者が多く、完全内臓逆位の頻度は 5,000～10,000 人に 1 人とされている^{1) 2)}。内臓逆位そのものに病的意義はないものの、臓器や脈管の位置が通常と鏡像関係にあるのみでなく、消化器系や心血管系の合併奇形の頻度が高いとされ、外科的手術を行う際にはこれらのことを念頭に入

れ慎重に進める必要がある。

内臓逆位の成因については、胎生初期に主要臓器原基の局所的配置が乱れ、これが他の臓器の逆位形成を誘発するという全臓器転移説^{16) 17)}、発生途上胎芽が正常とは逆に右へ回転し卵黄嚢が胎芽の右へくることにより本症が誘発される胎芽回転説¹⁸⁾、Kartagener 症候群にみられるような胎児の線毛運動の欠如に伴い偶然に支配されるという説¹⁹⁾、その他に多胎説、遺伝説などが報告されているがいまだ定説はない。本症例では副鼻腔炎・気管支拡張症は認めておらず、内臓逆位と合わせた 3 徴候の揃う Kartagener 症候群には該当していなかった。

内臓逆位に伴う合併奇形については、心血管系・消化器系にみられることが多いと報告されており、特に心血管系では正常人の心奇形発生率が 0.32～0.8%であるのに対し、内臓逆位症の心奇形合併率は 8～10%と約 10 倍の頻度とされる¹⁾。消化器系では無脾、

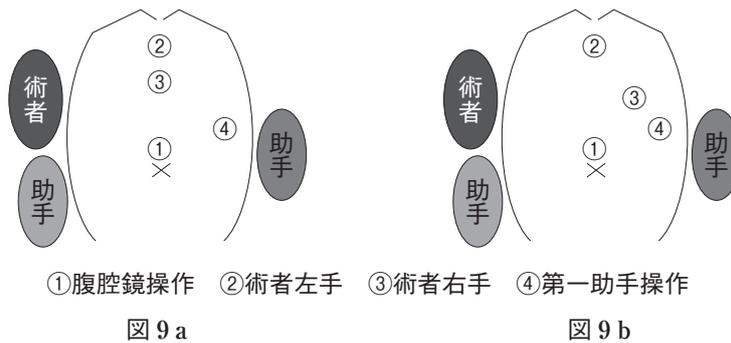


表 2

	報告者(年度)(文献)	年齢(性)	疾患名	合併奇形	剥離操作	手術時間
症例 1	千野ら(1995)(3)	49(男)	胆石症	なし	右	113 分
症例 2	高橋ら(2002)(4)	56(女)	胆石症	なし	右	88 分
症例 3	中川ら(2002)(5)	57(男)	胆石症	なし	右	43 分
症例 4	生澤ら(2002)(6)	68(男)	胆石症	なし	右	73 分
症例 5	内田ら(2002)(7)	38(男)	胆嚢内結石症	なし	左+右	135 分
症例 6	栗栖ら(2003)(8)	74(女)	胆石症	なし	右	190 分
症例 7	田中ら(2006)(9)	57(男)	急性胆嚢炎	なし	右	131 分
症例 8	井原ら(2007)(10)	82(男)	無石性胆嚢炎	多脾症	右	120 分
症例 9	中山ら(2007)(11)	44(男)	胆嚢内結石症	なし	右	63 分
症例 10	井原ら(2008)(12)	56(男)	胆嚢内結石症	なし	主に右	85 分
症例 11	川崎ら(2008)(13)	72(男)	総胆管結石症	なし	右	215 分
症例 12	大塚ら(2008)(14)	49(女)	胆嚢総胆管結石症	十二指腸前門脈	右	134 分
症例 13	新井ら(2010)(15)	71(女)	黄色性肉芽腫性 胆嚢炎	なし	右	134 分
症例 14	大東ら(2011)(2)	65(男)	胆嚢内結石	なし	主に右	146 分
本症例	朴ら(2013)	69(女)	胆嚢腺筋症	胆嚢動脈が外側 より胆嚢へ走行	主に右	65 分

※完全内臓逆位での腹腔鏡下胆嚢摘出術を double hand 法、右手操作で行った文献報告

多脾，肝形態異常，腸回転異常などが比較的高率に発症する¹⁻³⁾。ラパコレと関連した本邦報告例においても，多脾症や十二指腸前門脈を伴った症例が報告されている^{10) 14)}。また上腸間膜動脈から分岐する変異総肝動脈²⁴⁾や胆嚢動脈の奇形²⁵⁾を有していたとの報告もある。以上のような背景から，手術にあたっては慎重で注意深い観察を要した。本症例では，心奇形や消化器系の奇形はみられなかったものの，胆嚢動脈の走行が通常と異なり外側より胆嚢へ走行していた(図 7 b)。

完全内臓逆位症を併存したラパコレ症例の本邦報告例は，医学中央雑誌による検索(「完全内臓逆位」+「腹腔鏡下胆嚢摘出術 or ラパコレ」)では会議録も含めると 1992 年 12 月から 2012 年 12 月までに 38 例，手術方法として本症例と同様に double hand 法，右手操作で行ったことが確認できる文献報告は検索し得た限り，本症例を含め 15 例であった²⁻¹⁵⁾(表 2)。性別の内訳は男性 10 例，女性 5 例，年齢の分布は 38 歳

から 82 歳(平均 60.5 歳)であり，疾患名は多くが胆石症，あるいは胆嚢炎であった。胆嚢腺筋症での手術症例は本症例のみであり，比較的稀であると考えられた。手術時間は，症例によっては術中胆道造影や術中迅速組織診を行っているケースがあり単純比較はできないものの，最短で 43 分，最長で 215 分，平均 115.7 分となっている。

手術方法に関して最近では，内臓逆位のラパコレ症例で右利きの術者が執刀しやすいように，右手用のトロカール挿入位置を工夫することにより円滑に手術を行い得たとの報告がなされており，千野ら³⁾は剣状突起下穿刺部位の 3 横指尾側に縦に並べる形で右手用のトロカールを穿刺挿入し double hand 法で手術を行ったと報告し(図 9 a)，田中ら⁹⁾は左鎖骨中線上肋骨弓下 5 横指の位置に右手用トロカールを留置することで円滑な右手操作を得ることができたと報告している(図 9 b)。

内臓逆位症例の手術の際には、臓器の配置が通常と異なるという解剖学的理由からその操作に影響を及ぼすことが考えられるが、臓器の位置関係や血管脈管の走行を術前に十分把握して準備を行い、手術環境を適切に整えることで、内臓逆位の場合においても円滑に手術を行うことは可能であると考えられた。

おわりに

本症例では、完全内臓逆位症を伴う胆嚢腺筋症に対してラパコレを行ったが、臓器の位置関係の逆転や脈管の奇形を伴っている場合であっても、適切な準備と対応により十分安全に低侵襲な手術治療を行い得ると考えられた。

文 献

- 1) 勝木茂美, 深町信一, 小林 肇, 他: 内臓逆位症に合併した右外鼠径 Richter hernia の1例—過去10年間(1981~1990年)の本邦報告内臓逆位症250例の集計—. 日臨外医学会誌, 52: 2734-2741, 1991
- 2) 大東誠司, 須藤一起, 武田崇志, 他: 完全内臓逆位症を伴った胆嚢結石症に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 日臨外会誌, 72: 451-455, 2011
- 3) 千野 修, 佐々木哲二, 近藤泰理, 他: 全内臓逆位症に合併した胆石症に対し腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 消内視鏡, 7: 1171-1176, 1995
- 4) 高橋 収, 中村 豊, 菱山豊平, 他: 全内臓逆位症に合併した胆石症に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 日内視鏡外会誌, 7: 166-171, 2002
- 5) 中川国利, 鈴木幸正, 豊島 隆, 他: 腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した全内臓逆位の1例. 外科治療, 86: 1145-1148, 2002
- 6) 生澤史江, 内藤 剛, 土屋 誉, 他: 全内臓逆位症における腹腔鏡下胆嚢摘出術の経験. 日内視鏡外会誌, 7: 227-231, 2002
- 7) 内田寿博, 山内榮樹, 水野 琢, 他: 完全内臓逆位症に合併した胆嚢内結石症に対する腹腔鏡下胆嚢摘出術の経験. 近畿大医誌, 27: 97-101, 2002
- 8) 栗栖佳宏, 赤木真治, 佐藤克敏, 他: 全内臓逆位合併胆石症に対する腹腔鏡下胆嚢摘出術の経験. 広島医, 56: 345-347, 2003
- 9) 田中浩史, 山本穰司, 永井基樹, 他: 完全内臓逆位症に併存した急性胆嚢炎に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 臨外, 61: 843-846, 2006
- 10) 井原 司, 児玉孝仁, 野口純也, 他: 全内臓逆位症に合併した無石胆嚢炎に対し PTGBD 後, 腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 手術, 61: 1679-1683, 2007
- 11) 中山文夫, 小出 圭, 実綿啓明, 他: 完全内臓逆位症に合併した胆嚢結石症に対する腹腔鏡下胆嚢摘出術の経験. 日内視鏡外会誌, 12: 372, 2007
- 12) 森田圭介, 井原 司, 中本充洋, 他: 完全内臓逆位症における腹腔鏡下胆嚢摘出術の1例. 臨外, 63: 1005-1008, 2008
- 13) 川崎浩資, 西田 司, 梅本健司, 他: 完全内臓逆位に合併した胆石・総胆管結石症に対し内視鏡的乳頭括約筋切開術および腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 日消外会誌, 41: 1946-1952, 2008
- 14) 大塚隆生, 高橋知秀, 村上聡一郎, 他: 3D-CT画像構築が特殊な解剖形態解析に有用であった完全内臓逆位症に対する腹腔鏡下胆嚢摘出術の1例. 日内視鏡外会誌, 13: 324, 2008
- 15) 新井周華, 布村正夫, 安藤克彦, 他: 完全内臓逆位症に併発した黄色性肉芽腫性胆嚢炎に対し腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例. 日消外会誌, 43: 1152-1158, 2010
- 16) 筒井一興, 松沢信五: 完全内臓逆位者の胃癌手術例. 臨放, 1: 637-640, 1956
- 17) 安田峯生: 内臓逆位症. 木本誠二監修. 現代外科学体系8-B. 中山書店, 東京, 261-263, 1974
- 18) Schmuter KJ, Linde LM: Situs inversus totalis associated with complex cardiovascular anomalies. Am Heart J, 56: 761-768, 1958
- 19) 久保田伊知郎, 平川信之, 豊田清一, 他: Kartagener 症候群に腓体尾部癌を合併した1例. 消外, 12: 2005-2008, 1989
- 20) 村上聡一郎, 大塚隆生, 高橋知秀, 他: 完全内臓逆位症に対する腹腔鏡下胆嚢摘出術に際し3D-CT画像構築が特殊な解剖形態解析に有用であった1例. 日内視鏡外会誌, 14: 717-723, 2009
- 21) 松川啓義, 八木孝仁, 貞森 裕, 他: Kartagener 症候群を伴う完全内臓逆位症に対して肝切除を施行した1例. 日消外会誌, 40: 1915-1920, 2007
- 22) 永瀬剛司, 足立 巖, 吉野裕司, 他: 腸回転異常症を伴う全内臓逆位症に合併した上行結腸癌の1例. 日臨外会誌, 64: 1773-1776, 2003
- 23) 大久保清一郎, 宮川 兜, 松岡寿夫, 他: 内臓逆位症および十二指腸潰瘍を伴った Preduodenal Portal Vein の1例. 日消外会誌, 11: 310-314, 1978

- 24) 瀬下達之, 伊藤雅夫, 門田一宣, 他 : 全内臓逆位を伴った肝細胞癌の1切除例. 日消外会誌, 32 : 2573-2576, 1999
- 25) Kamitani S, Tsutamoto Y, Hanasawa K, et al. : Laparoscopic cholecystectomy in situs inversus totalis with “inferior” cystic artery : a case report. World J Gastroenterol, 11 : 5232-5234, 2005
- 26) Pavlidis TE, Psarras K, et al. : Laparoscopic cholecystectomy for severe acute cholecystitis in a patient with situs inversus totalis and posterior cystic artery : Diagn Ther Endosc, 10 : 1155, 2008
- 27) Machado NO, Chopra P, et al. : Laparoscopic Cholecystectomy in a Patient with Situs Inversus Totalis : Feasibility and Technical Difficulties. JSLS, 10 : 386-391, 2006