

症 例 報 告

十二指腸癒痕狭窄に Groove Pancreatitis 様の 画像所見を伴った小児例の経験

高野周一, 大塩猛人, 石橋広樹, 緒方宏美

独立行政法人国立病院機構 香川小児病院 小児外科

A Case of Secondary Duodenal Stenosis in a Child Associated with Partial Pancreatomegaly Similar to Groove Pancreatitis

Shuichi Takano, Takehito Oshio, Hiroki Ishibashi, Hiromi Ogata

Department of Pediatric Surgery, National Kagawa Children's Hospital

Abstract Duodenal stenosis is well known as a complication of peptic ulcer. It sometimes occurs associated with "groove pancreatitis" in adults. We treated such a case in a child, with findings resembling those of groove pancreatitis.

A 6-year-old boy was admitted having experienced recurrent vomiting and stomachache over at least three years. His fluororotgenography revealed a gastrectasia and a stenosis of the duodenal cap. We found endoscopically that he had a duodenal ulcer. We examined him with US, CT and MRI, which showed marked swelling in the head of the pancreas. A palliative gastroduodenostomy was performed, and no mass lesion was found in the pancreas during the operation. His postoperative course has been uneventful for six months.

Postoperatively, disappearance of the abnormal swelling of the pancreas was confirmed by using US and CT. We finally diagnosed him as having duodenal stenosis due to duodenal ulcer associated with some kind of pancreatitis such as groove pancreatitis.

Keywords Children, Duodenal Stenosis, Peptic Ulcer, Pancreatomegaly, Groove Pancreatitis

はじめに

われわれは幼児期発症の十二指腸潰瘍で積極的に診断・治療が行われないまま長期経過したと思われる症例を経験した。本症例では、十二指腸の癒痕狭窄による通過障害に加えて成人でみられる Groove pancreatitis 様の画像所見を呈したため、両者の関連性について考察し報告する。

症 例

症例：6歳、男児

主訴：反復性嘔吐、腹痛

家族歴：特記事項なし。

既往歴：周産期に特記事項なし。薬剤多用歴なし。生後5ヵ月で食物アレルギー（牛乳、卵）あり。生後10ヵ月でサルモネラ腸炎にて入院歴あり。

原稿受付日：2006年10月18日、最終受付日：2006年12月6日

別刷請求先：〒765-8501 善通寺市善通寺町2603 国立病院機構 香川小児病院 小児外科 高野周一

現病歴：2歳時に母親が次子を妊娠し悪阻が増強していた時期に、祖母の死去に直接立ち会う機会が重なるという精神的ストレスを窺わせるエピソードがあった。それ以降、腹痛、嘔吐を反復するようになり、1ヵ月に1回以上の嘔吐を認めていた。近医に通院したが経過せず症状が遷延するため、4歳時に当科を紹介され受診した。上部消化管造影で十二指腸球部の通過障害を指摘され、

Table Laboratory data

WBC	101.2 ×10 ² /mm ³	Neut.	52.0 %
RBC	496 ×10 ⁴ /mm ³	Lymp.	38.0 %
Hgb	12.5 g/dl	Mono.	2.0 %
Hct	37.6 %	Eo.	7.0 %
Plt	51.8 ×10 ⁴ /mm ³	Baso.	1.0 %
AST	26 IU/l	Amy.	200 IU/l
ALT	10 IU/l	lipase	22 IU/l
LDH	180 IU/l	Na	141 mEq/l
ALP	283 IU/l	K	3.7 mEq/l
T.Bil.	0.40 mg/dl	Cl	101 mEq/l
TP	6.7 g/dl	Ca	8.7 mg/dl
Alb.	3.9 g/dl	Glu.	77 mg/dl
BUN	13.8 mg/dl	T.Chol.	118 mg/dl
Crn.	0.23 mg/dl	Fe	43 μg/dl
		CRP	0.59 mg/dl

内視鏡検査を勧めたが、一時的に症状が軽快したこと、全身麻酔下の内視鏡検査に対する抵抗感を理由に通院を中断した。その後も症状が反復し、5歳時には3日に1回嘔吐するようになった。幼稚園への通園にも支障を来たし、この頃から成長障害も指摘されるようになった。6歳時に、ほぼ毎日嘔吐するようになり他院を介して当科を再受診した。

現症：身長104 cm、体重14.0 kg (いずれも標準値の-2SD)。上腹部に著明な膨満を認め、その右寄りに軽度の自発痛、圧痛を認めた。腫瘍の有無については触診困難であった。腹膜刺激徴候はなかった。

血液検査所見：好酸球分画の上昇を伴う白血球数の軽度上昇を認めた。血清アミラーゼ値、CRP値の軽度上昇も認めた。また、総コレステロール、血清鉄の値は軽度低下していた(Table)。

上部消化管造影所見：著明な胃拡張を認めた。内容物を可及的に除去した後に造影し、幽門輪付近の狭窄と十二指腸球部肛側でのより強い狭窄を認めた(Fig.1)。

US検査所見：胃幽門前庭から肛側に向かって壁肥厚を認めた。十二指腸球部と推定される腸管

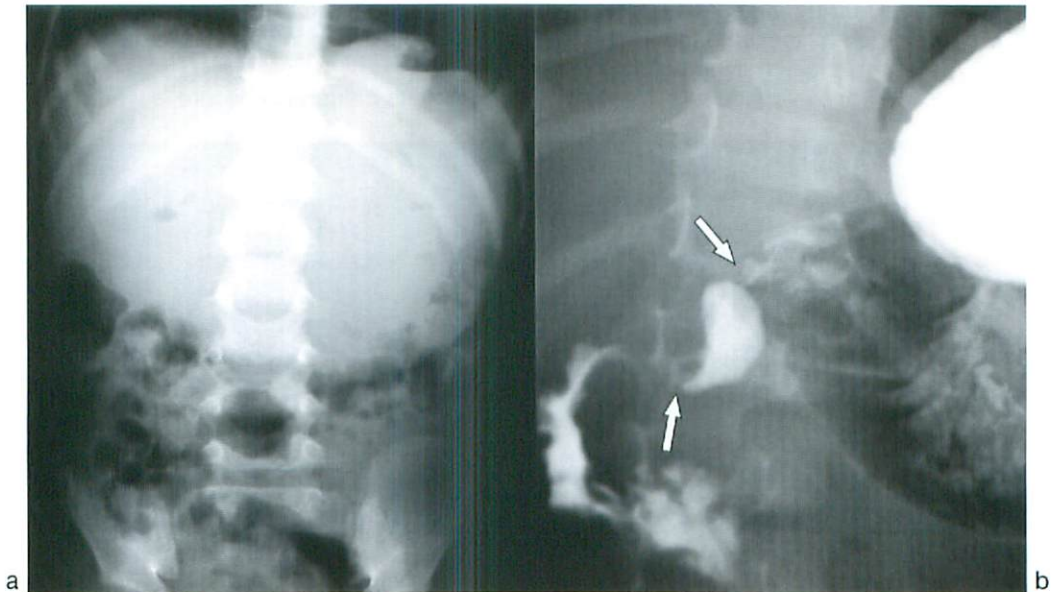


Fig.1 Upper Gastrointestinal Series

a : Gross dilatation of the stomach is observed before the drainage.

b : There appear two areas of marked stenosis in the duodenal ampulla.

壁に著明な肥厚を認めた。臍頭部の著明な腫瘤様病変を認め、十二指腸との境界は不鮮明であった。なお、臍体尾部には腫大がなく、臍管拡張も認めなかった (Fig.2)。

造影CT検査所見：臍頭部および十二指腸球部付近が混然とし、 $4 \times 3 \times 6$ cmの腫瘤像を認めた。

その内部は結節状に high attenuation な部分と、間隙を埋める low attenuation な部分が混在したモザイク状の像を呈し、臍体尾部に比較し僅かに造影効果を認めた (Fig.3)。

MRI 検査所見：腫瘤様病変は臍体尾部と比べ、T1 強調画像で low intensity, T2 強調画像 (脂肪抑

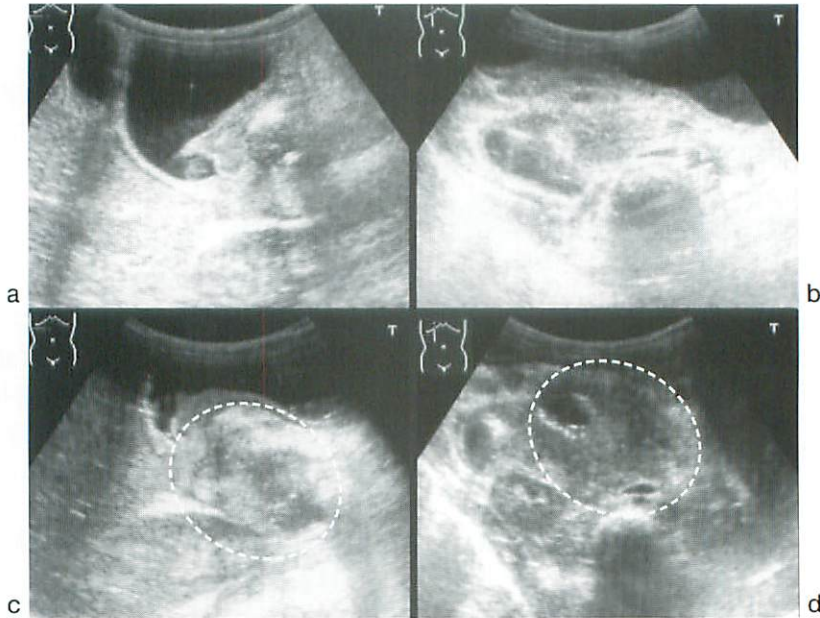


Fig.2 Ultrasonography of Abdomen

- a : The wall of the stomach is thickened at the pyloric antrum.
- b : The pancreas looks normal in the body and the tail. The pancreatic duct is not dilated.
- c : A mass-like lesion appears behind the duodenum.
- d : The wall of the duodenum is also thickened and its margin is obscure.

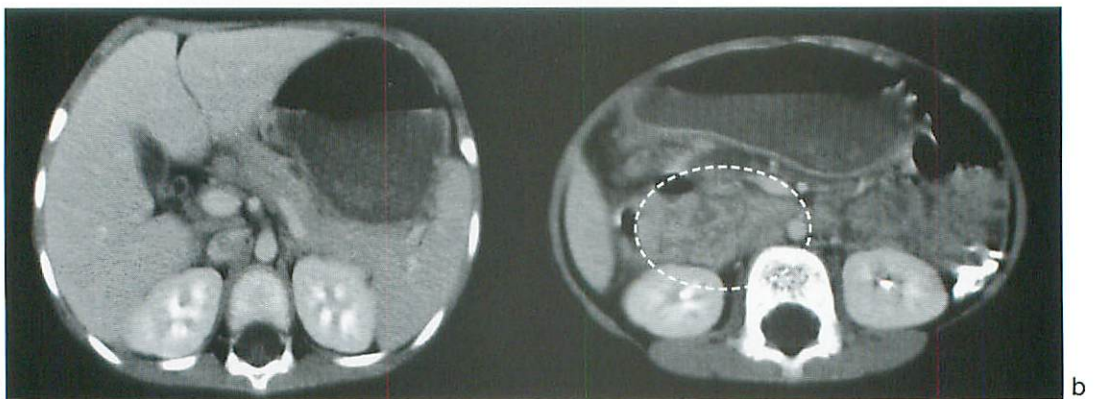


Fig.3 Enhanced CT of the Abdomen

- a : The body of the pancreas looks normal and no dilatation is seen in the pancreatic duct.
- b : A mottled mass-like lesion is seen in the head of the pancreas. The division between the duodenum and pancreas is unclear.

制条件)でややhigh intensityを呈した(Fig.4).

上部消化管内視鏡所見：幽門前庭に壁外からの圧排が見られた。幽門輪が腫脹しており内視鏡の挿入が困難であった。観察し得た範囲では十二指腸球部に、発赤、びらん、白苔付着、治癒癒痕など、新旧の潰瘍性病変が混在した塑造な粘膜面を認めた。球部より肛側にさらに強い狭窄があり、それ以上の内視鏡挿入は不可能であった。

入院後経過：プロトンポンプ阻害薬を投与しながら絶食で経過を見たが、胃の拡張傾向が持続した。原因検索として血清ガストリン値、抗H.Pylori抗体値を測定し、内視鏡検査の際に十二指腸球部の潰瘍辺縁と幽門前庭大弯側の非病変部との2カ所で粘膜生検も行ったが、特記すべき所見を認めなかった。十二指腸の狭窄病変は長期的に形成されたものと推測し、保存的治療での治癒は困難と考へて開腹手術の方針とした。膵頭部腫大につい

ては腫瘍性疾患の可能性も疑ったが腫瘍マーカー(AFP, CA19-9, NSEなど)は正常範囲であった。小児では報告はないが、画像所見が類似していたことからGroove pancreatitisのような腫瘤形成性の慢性膵炎の可能性も疑った。膵頭部腫大についてもまた術中に確認することとした。

手術所見：上腹部正中切開にて開腹した。幽門前庭部から十二指腸下行脚にかけて、腸管壁は浮腫性に肥厚していた。その付近では大網、間膜組織も肥厚し、病変部に向って牽引されていた。狭窄は球部下行脚移行部で最も強く、固い線維化組織で巻き込まれていた(Fig.5)。膵頭部はその背側に幼児手拳大に触れたが、術中US検査では占拠性病変を疑う異常影は観察されなかった。肉眼的に十二指腸と膵の境界は明瞭であった。十二指腸狭窄に対してはJaboulay法に準じた胃十二指腸吻合術を施行した。十二指腸内に胆汁排泄を認めた

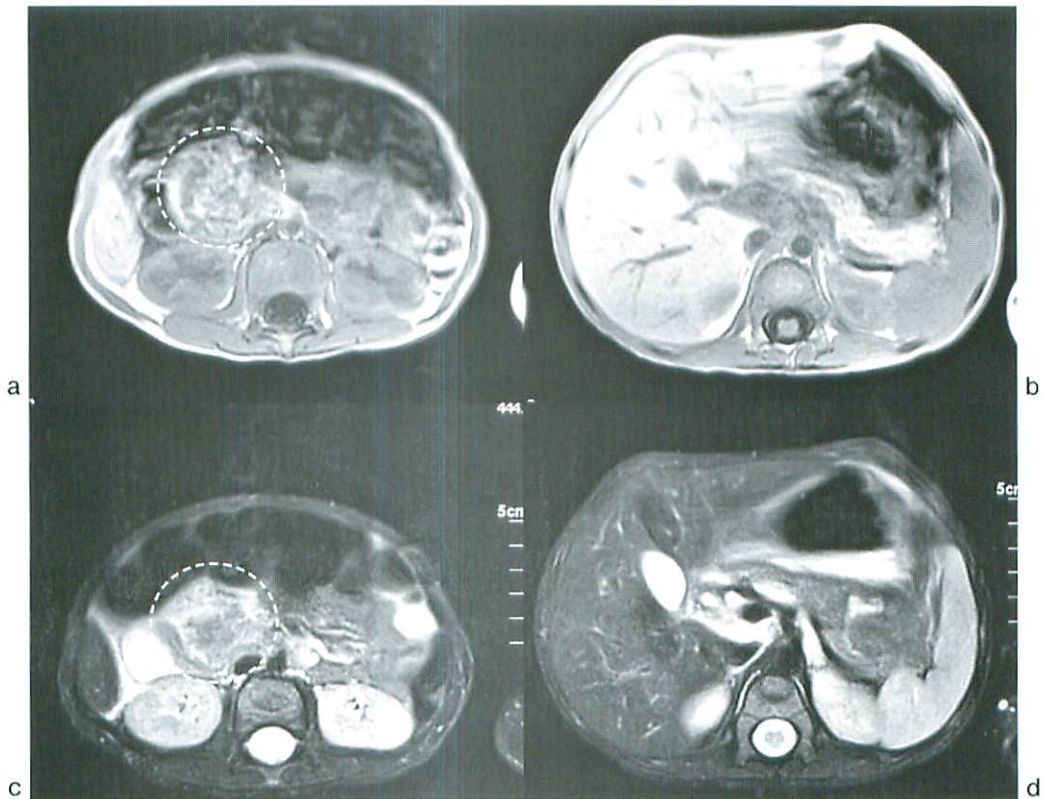


Fig.4 MRI of the Abdomen

- a, b : The swelling lesion of the head of the pancreas appears in low intensity relative to the other regions of the pancreas on T1-weighted images.
 c, d : The same lesion is in slightly high intensity on T2-weighted images.

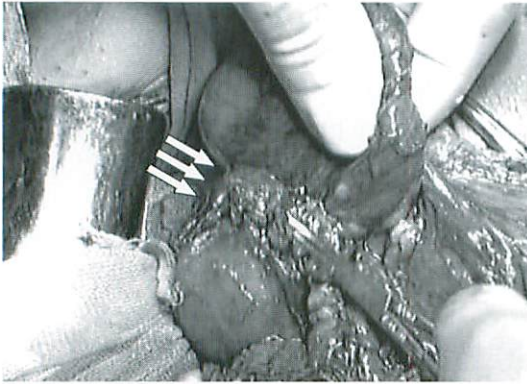


Fig.5 Operative Findings

Sclerous fibrous tissue surrounds the duodenum between the bulbous and the descending part, where the wall of the alimentary tract becomes edematous.

が、十二指腸乳頭はよく観察できなかつた。膵へは直接的な侵襲を加えることは避け、手術を終了した。

術後経過：術後早期から経鼻十二指腸チューブにて経腸栄養を行った。術後2週間から経口栄養を開始し、術後4週間で合併症なく退院した。

退院後、症状再燃は認めていない。術後10ヵ月時点でのUSおよびCT検査所見では、膵頭部に若干の腫大が残っていたが、術前よりは縮小し内部均一となっていた。

最終診断：十二指腸潰瘍、十二指腸癒痕狭窄、Groove pancreatitisの疑い。

考 察

小児の胃十二指腸潰瘍が決して稀でないことが認識されて久しい。小児消化性潰瘍の原因も多くは成人同様に説明され、加藤らは小児の十二指腸潰瘍の90%、胃潰瘍の50%にH.pylori感染が存在することを示している¹⁾。一方、小児のH.pylori陰性潰瘍では、その原因として社会環境から受ける精神的ストレスの関与や遺伝的素因、基礎疾患の存在も注目されている²⁻⁷⁾。医療者の関心の高まりと相まって、小児の内視鏡検査法が普及した今日、小児消化性潰瘍の診断が得られる機会が多い。

胃十二指腸潰瘍の症状は年齢により異なり、新生児期・乳児期は、吐血や穿孔が主であるが、成長に従って腹痛、嘔吐、食欲不振など主観的

症状も得られるようになる^{2,5,8,9)}。近年ではH2-blockerを中心とする保存的治療で軽快することが多くなったが、年長児では再発例も多く、著しい出血、穿孔、狭窄症状を合併すれば年齢に関わらず手術適応となる^{5-7,10,13-17)}。実際に十二指腸狭窄を合併した症例も複数報告されている^{3,8,11,14,15)}。

本症例は、2歳時に十二指腸潰瘍の初発症状と推定される腹痛、嘔吐の症状があった。4歳時には十二指腸狭窄を疑う造影所見を既に認めていた。その2年後には正常な経口摂取が不能となった。内視鏡検査で十二指腸潰瘍が確認されたが、H.pylori感染は否定的であり、負荷試験までは行わなかったが血中ガストリン濃度も基準値内であった。既往歴に食物アレルギーがあり、免疫学的な素因が関与している可能性はあるが臆測の域を出ない。ステロイド剤やNSAIDs等の多用歴もなかった。本症例には、初発症状を認める直前の時期に精神的ストレスを窺わせるエピソードがあった。証明は困難だが、これを契機に十二指腸潰瘍が起り、軽快・再燃を繰り返した結果として不可逆的な十二指腸の癒痕狭窄を形成したと推測された。

Groove pancreatitisは、膵管には特に所見がなく、膵、総胆管、十二指腸の間の解剖学的な“groove”に局在する限局性膵炎について1973年にBeckerが提唱した病態である¹⁶⁾。Stolteらが成人30症例を検討して疾患概念をまとめ¹⁷⁾、炎症がgrooveに限局するPure formと、膵頭部背側にも波及するSegmental formに分類している。その後、多くの報告例がある¹⁸⁻²⁷⁾。一般にGroove pancreatitisは中年以降でアルコール多飲傾向のある男性に好発し¹⁷⁻²¹⁾、胆道系疾患、消化性潰瘍、胃切除術後などの既往が関連因子とされている^{17,18)}。また、Groove pancreatitisでは、その誘因あるいは合併症として十二指腸狭窄を認めることが報告されている^{17-22,26,27)}。StolteらはGroove pancreatitisの発生機序について、その1つに小十二指腸乳頭の閉塞を挙げている¹⁷⁾。小十二指腸乳頭が閉塞すれば、Santorini管からの順行性の流出が不可能となる。膵液の排出はWirsung管へ逆流性にのみ行われるが、当然、停滞しやすい状態となるため、何らかの契機でSantorini管の領域に限局した膵炎が生じると説明している。

画像所見は、US検査では肥厚した十二指腸下行脚と膵頭部との間にシート状の低エコーの腫瘍が認められ、腫瘍内に嚢胞が認められることもある^{21,23)}。CT検査では十二指腸の壁肥厚を伴う狭窄像と炎症の程度に応じた膵頭部の腫脹が見られ、dynamic CTでは早期に腫瘍部分が染まらず、後期に緩徐に造影される^{18,24)}。MRI検査では腫瘍部分が正常な膵実質に比べてT1強調でlow intensity、T2強調画像でiso/high intensityに描出される²⁵⁾。いずれの画像検査法でも膵管拡張は観察されないことが多い。

本症例では著明な膵頭部腫大の所見が認められた。膵・胆管の拡張は認めず、膵体尾部には特記所見が無かった。十二指腸潰瘍からの単なる炎症の波及と説明するには広範囲に及んでいた。穿通性の十二指腸潰瘍であれば、膵頭部に腫大を来すこともあり得るが、本症例の来院時の症状、血液検査所見の異常は軽度であった。血清アミラーゼ値の上昇は軽度かつ一過性であった。腫瘍のUS、CT、MRIの検査所見は文献に示されたGroove pancreatitisの特徴に類似していた。以上から、Groove pancreatitisのような特殊な慢性膵炎を伴っていた可能性も推測した。

Groove pancreatitisの治療については、腫瘍との鑑別が困難なことが多く、外科的切除が施行されることが多いが、保存的治療で軽快した報告もある^{26,27)}。なお、本症例の膵頭部腫大は直接的な操作を加えることなく縮小傾向にある。

本症例についてわれわれは、十二指腸潰瘍を起因として膵病変が生じたものと推測した。一方、潜在的な膵病変を誘因として十二指腸潰瘍が生じた、あるいは両者が相互に作用したという見方も可能かも知れない。

われわれが検索した限りでは、Groove pancreatitisの小児例の報告は無かった。しかし、先天的な小十二指腸乳頭の閉塞や、膵管合流部の解剖が関与するのであれば、理論的には小児でも起こり得る病態であろう。今後さらに、同様の所見を呈する小児例について検討されることが期待される。

結 語

小児の十二指腸潰瘍狭窄に膵頭部腫大を伴った症例を経験した。小児消化性潰瘍の早期診断・治

療の重要性を改めて示唆すると同時に、小児でもGroove pancreatitisを来す可能性が示唆された症例であった。

●文献

- 1) 加藤晴一：小児期H.pylori感染の疫学と臨床。日本臨床 2001；59：337-341。
- 2) 佐々木信義，原善二夫，大和俊信，他：小児消化性潰瘍の発生要因。小児外科 1989；21：1063-1067。
- 3) 高橋良土，宮原信弘，宮原祝子，他：小児消化性潰瘍の特徴と問題点。小児外科 1989；21：1082-1086。
- 4) 山本 弘，西寿 治，山田亮二，他：小児消化性潰瘍児の臨床像。小児外科 1989；21：1087-1092。
- 5) 平間敏憲，永山 稔，前田知美，他：二次性消化性潰瘍の病態と治療。小児外科 2003；35：1462-1465。
- 6) 渡辺 哲，藤山純一，齋藤 徹：血管性紫斑病に合併した胃十二指腸潰瘍。小児外科 2003；35：1475-1479。
- 7) 村守克己，永田公二，飯田則利：ストレスによる胃十二指腸潰瘍。小児外科 2003；35：1480-1484。
- 8) 大沼直躬，高橋英世，田辺政裕，他：小児消化性潰瘍の治療成績。小児外科 1989；21：1129-1134。
- 9) 田端雅彦，伊藤 賢，友政 剛：胃十二指腸潰瘍の食事療法。小児内科 1994；26増：240-243。
- 10) 加藤晴一，原田吉憲，小松和久：小児消化性潰瘍の臨床的解析。小児外科 1989；21：1093-1098。
- 11) 栗田信浩，西井 博，小笠原邦夫，他：小児消化性潰瘍の手術経験。小児外科 1998；30：547-551。
- 12) 松久忠史，秦温 信，松岡伸一，他：小児穿孔性十二指腸潰瘍の1例。小児外科 2001；33：216-219。
- 13) 吉田達之，大野耕一，上田正直，他：緊急手術を要した出血性十二指腸潰瘍の1例。小児科臨床 2002；55：257-261。
- 14) 工藤寿美，岩中 督，内田広夫，他：出血性消化性潰瘍の外科的治療。小児外科 2003；35：1471-1474。
- 15) 杉山正彦，橋都浩平：十二指腸狭窄後の難治性十二指腸潰瘍。小児外科 2000；32：1153-1155。
- 16) Becker V: Spezielle pathologische Anatomie Band 6; Bauchspeicheldrüse. Springer-Verlag, Berlin Heiderberg New York, 1973.
- 17) Stolte M, Weiß W, Volkholz H, et al: A Special Form of Segmental Pancreatitis: "Groove Pancreatitis". Hepato-gastroenterology 1982; 29: 198-208.

- 18) Shudo R, Yazaki Y, Sakurai S, et al : Groove Pancreatitis : Report of a Case and Review of the Clinical and Radiologic Features of Groove Pancreatitis Reported in Japan. Internal Medicine 2002 ; 41 : 537-542.
 - 19) 松本 勝, 五嶋博道, 富田 隆, 他 : 十二指腸狭窄の再発を呈した Segmental groove pancreatitis の1例. 胆と膵 1991 ; 12 : 1397-1402.
 - 20) 小林道也, 荒木京二郎, 中村生也, 他 : 十二指腸狭窄を呈した groove pancreatitis の1例. 日消外会誌 1995 ; 28 : 2290-2294.
 - 21) 森 茂, 横尾直樹, 北角泰人, 他 : 仮性嚢胞を伴い興味ある経過を示した groove pancreatitis の1例. 日臨外会誌 1998 ; 59 : 1630-1634.
 - 22) 有賀浩子, 河西 秀, 小池秀夫, 他 : 膵頭部癌が否定できず膵頭部十二指腸切除を施行した segmental groove pancreatitis の1例. 日消外会誌 1998 ; 31 : 2255-2259.
 - 23) 蒲田敏文, 松井 修, 角谷真澄 : Groove Pancreatitis. 胆と膵 2002 ; 23 : 679-683.
 - 24) Itoh S, Yamakawa K, Shimamoto K, et al : CT findings in groove pancreatitis : correlation with histopathological findings. J Comput Assist Tomogr 1994 ; 18 : 911-915.
 - 25) Irie H, Honda H, Kuroiwa T, et al : MRI of Groove Pancreatitis. J Comput Assist Tomogr 1998 ; 22 : 651-655.
 - 26) Isayama H, Kawabe T, Komatsu Y, et al : Successful treatment for groove pancreatitis by endoscopic drainage via the minor papilla. Gastrointestinal endoscopy 2005 ; 61 : 175-178.
 - 27) 山 英仁, 紺野 潤, 熊谷研一, 他 : Groove pancreatitis をきたした1例. 道南医学会誌 2005 ; 40 : 57-59.
-