

症 例 報 告

腫瘍への空気の流入により判明した小腸重複症の
新生児の1例毛利 健, 雨海照祥, 川上 肇, 室伏雅之
茨城県立こども病院 外科Intestinal Duplication Cyst with Air Influx Phenomenon ;
An Idea to Diagnose Intestinal Duplication Cyst

Takeshi Mouri, Teruyoshi Amagai, Hajime Kawakami, Masayuki Murofushi

Department of Pediatric Surgery, Ibaraki Children's Hospital

Abstract A girl with body weight 3080g was delivered vaginally. At 25 weeks gestational age, unilocular cystic lesion of right lower abdomen had been detected by fetal ultrasonography (US). Her right abdomen bulged on the second day of life, and she started to vomit on the fifth day. She was diagnosed with ovarian cyst tentatively by plain abdominal X-ray, US and CT scan. On the tenth day, air influx and air-fluid level, which was shown inside of the cyst by plain abdominal X-ray and CT scan, led to a diagnosis of duplication of the small intestine. A laparotomy was undertaken on the 11th day of her life and revealed that she had a duplication cyst of the ileum with a communication noted between the cyst and ileum.

It was conceivable that mucus had pooled in the duplication cyst during her embryonal period, after which the liquid was replaced by air from the ileum through the conduit after birth.

Keywords Duplication of alimentary tract, Fetal ultrasound, Newborn, Air-fluid level

はじめに

消化管重複症は、単純X線撮影、超音波検査、CT、消化管透視などで診断され、さらに胎児超音波検査によっても描出され得るが、特異的な症状はなく、術前確定診断は困難とされる¹⁾。

われわれは、腹部嚢胞の出生前診断を受けた新生児において、出生後、腫瘍内への空気の流入が生じたことにより小腸重複症と診断可能であった症例を経験した。嚢腫状消化管重複症においては

正常腸管との交通があることはまれであるが^{2,3)}、自験例はそれが診断の手がかりになった貴重な症例であり報告する。

症 例

症例は、生後5日の女児、体外受精胚移植妊娠。在胎25週、胎児エコーで右腹腔内に嚢胞を認めた。自然分娩にて、40週4日、3080gで出生した。生後2日目に右腹部膨隆を認め、5日目嘔吐のため当科に転院した。身体所見上、右腹部に可動性の

原稿受付日：2005年10月20日、最終受付日：2005年11月28日

別刷請求先：〒311-4145 茨城県水戸市双葉台3-3-1 茨城県立こども病院 外科 毛利 健

ある腫瘍を触知した。

検査所見では、白血球 $11400/\mu\text{l}$ 、ヘモグロビン $18.0\text{g}/\text{dl}$ 、CRP $0.5\text{mg}/\text{dl}$ 、アルファフェトプロテイン $381\text{ng}/\text{ml}$ と、新生児としては正常範囲だった。生後5日の仰臥位腹部単純写真では、右腹部に腸管を正中を越えて圧排する腫瘤像を認めた (Fig.1)。腫瘤の下端は骨盤腔に達していた。同日の腹部超音波では、肝下面に接する単胞性の嚢胞状病変を認めた。壁は薄く、層構造は明らかでなかった (Fig.2)。腹部CTも同様に、右腹部に嚢

胞状病変を認めた。石灰化はなく、大きさは $6.5 \times 5.4\text{cm}$ であった。腸管との付着については明らかでなかった (Fig.3)。

可動性のある嚢胞であり、肝や腎の由来は考えにくく、右卵巢嚢腫疑いの診断で手術が予定された。患児は経口摂取可能であり待機手術とした。待機中、触診で腫瘤の縮小を認めたため、生後10日目、腹部単純写真を撮影した。右腹部に長径

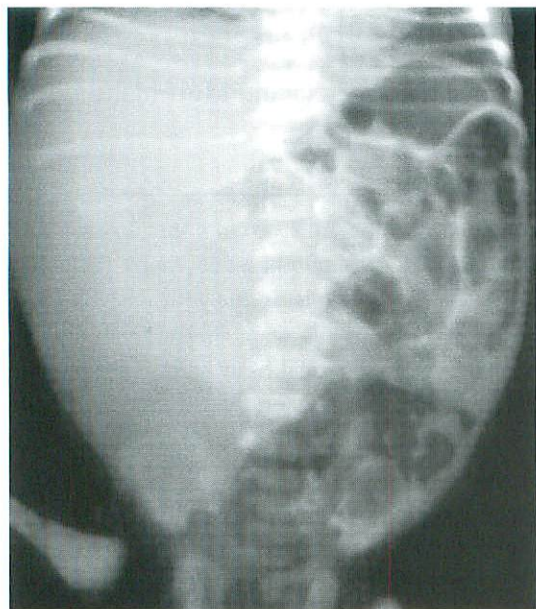


Fig.1 Abdominal X-ray on the fifth day of life shows large mass effect in the right abdomen and deviation of intestinal gas to left side.

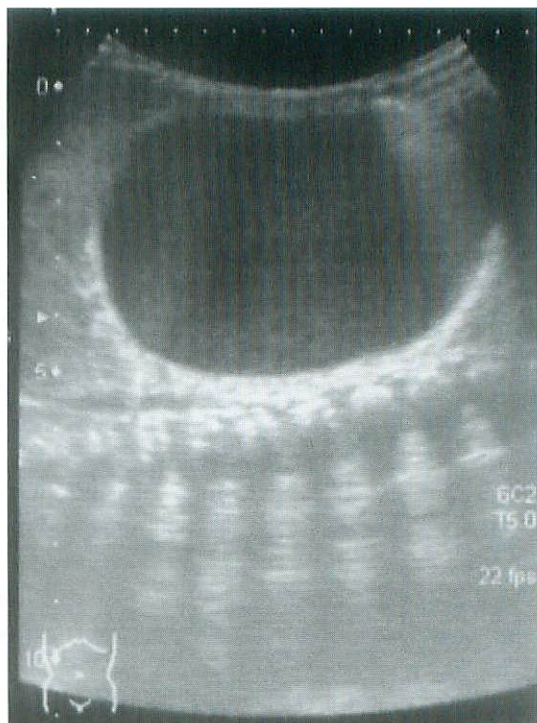


Fig.2 Abdominal echogram on the fifth day of life shows unilocular cystic lesion of the right abdomen. The two layer structure of the wall cannot be recognized.

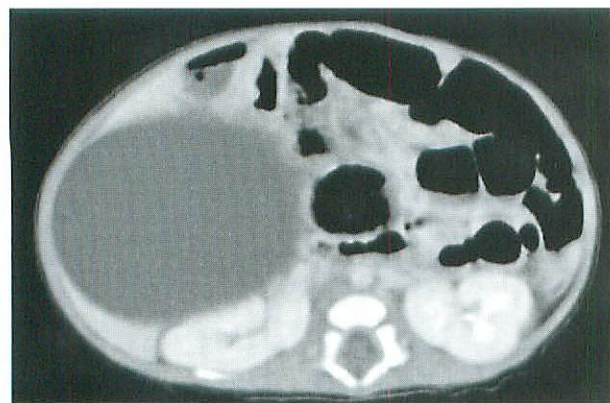


Fig.3 Abdominal CT scan on the fifth day shows bulky cyst in right abdomen. No septal wall or calcified lesion are identified in the cyst.

3.8cmの円形のガス像を認めた。立位単純写真で同部位にガス像を認め、内部にair-fluid levelを認めた(Fig.4)。同日の腹部CTで腫瘍のサイズは4.0×3.2cmに縮小しており、内腔にやはりair-fluid levelを認めた(Fig.5)。

腫瘍内の空気の由来は、腸管以外には考え難いため、診断を小腸重複症とし、翌日手術を施行した。回盲弁から16cmの部位で回腸腸間膜側に腫瘍を認め、術中診断を回腸重複症とした。回腸とともに重複腸管を切除し、端々吻合を行った。腫瘍の大きさは4.0×4.3×3.2cmであった。

病理では、嚢胞の内面は小腸粘膜と同一で部分的に重層扁平上皮になっていた。嚢胞は、粘膜筋板、粘膜下層、固有筋層、漿膜を有し、正常小腸と同様の構造を呈し、回腸と外縦筋を共有してい

た(Fig.6)。回腸重複症と診断された。さらに直径2mmの瘻孔による嚢胞と隣接回腸の交通を認めた(Fig.7)。交通部は嚢胞粘膜の重層扁平上皮と回腸粘膜が連続して移行しており、先天性の瘻孔と考えられた。

考 察

小腸重複症の診断には通常、単純X線撮影、超音波検査、CT、消化管透視、^{99m}Tc-pertechnetateによるシンチグラムが用いられる¹⁾。

近年、嚢胞を胎児診断される小腸重複症(以下、本症)の報告が散見される^{2,4,5)}。本症の超音波所見については、単房性嚢胞性腫瘍であること、壁は腸管粘膜に相当する高エコーの内層と筋層に相当する低エコーの外層の2層からなることが典型

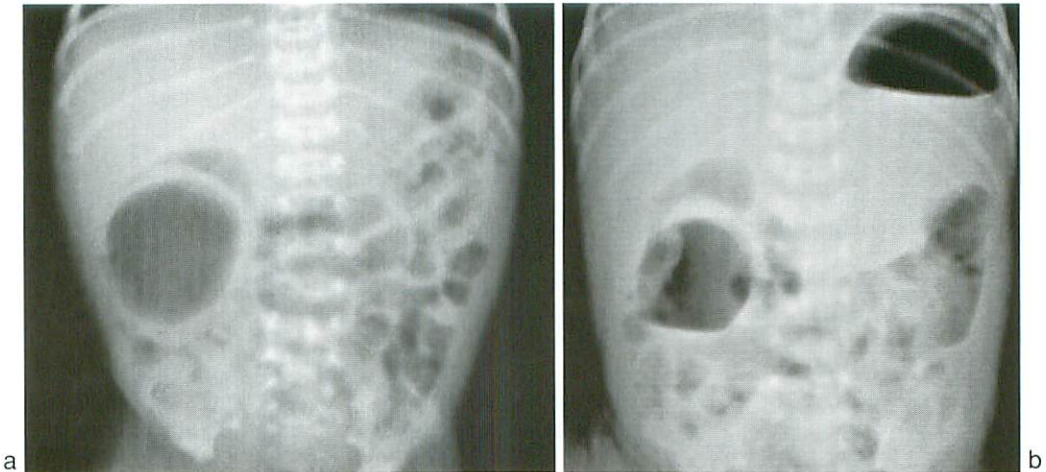


Fig.4 Abdominal X-ray on tenth day of life : a (supine position) shows oval-shaped air in right abdomen and b (up right position) demonstrates air-fluid level appearance in the same region.



Fig.5 Abdominal CT scan on the tenth day shows air-fluid level in the cyst. The tumor size is reduced compared with previous study.

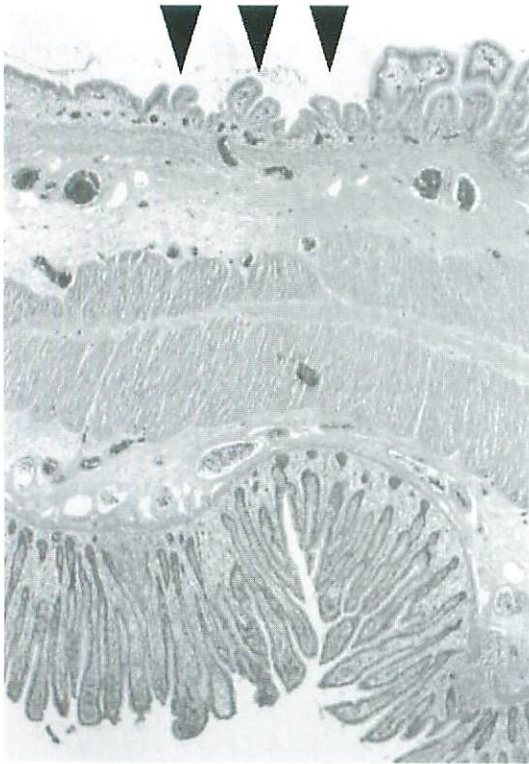


Fig.6 Pathological findings : Arrowheads point to the lumen of the duplication cyst.

像とされる⁶⁾。自験例では入院時に後者の所見が得られず、女兒において頻度の高い疾患である卵巣嚢腫と診断した。

手術待機中に腫瘤に一致してガス像が出現し、立位X線写真、CTにおいてair-fluid levelを認めたが、感染症状や腸閉塞症状はなく、出現したガスは嫌気性菌由来、腸閉塞によるものとは考えにくかった。腫瘤は小腸重複症であり、腸管との交通から重複腸管に空気が流入したと推測した。切除標本では、腫瘤は平滑筋層を有し、内面に消化管粘膜を認め、消化管の一部に密着し筋層を共有す

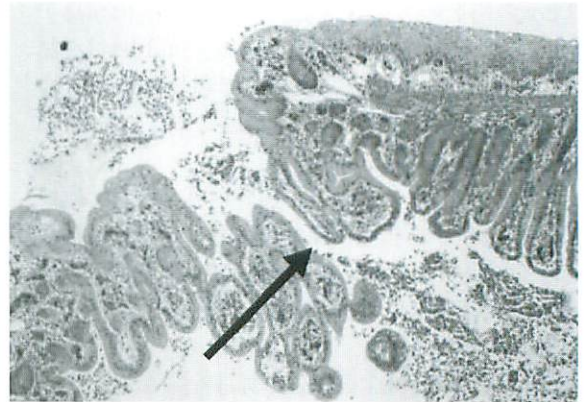


Fig.7 Pathological findings : Arrow shows the communication between cyst and ileum.

ることから、消化管重複症の定義を満たし⁷⁾、回腸重複症と診断した。すなわち自験例では、胎生期から嚢胞内に粘液が貯留し、出生後、交通部分を通じて液体と空気が置換したと考えられた。

本症は形態的に嚢腫状・管状型に分類され、頻度は嚢腫状が多いとされる^{2, 3, 8)}。山田らは、正常腸管と重複腸管の交通について、本邦の新生児の嚢腫状重複腸管を集計し、113例中4例(3.3%)に認めたと報告している²⁾。他の文献でも嚢腫状の重複症で腸管と交通のあるものはまれであるとされている³⁾。

また画像検査でair-fluid levelを呈した本症の報告は、腸閉塞を除くと検索し得た範囲では自験例を含め4例のみであった(Table 1)^{9~11)}。発症年齢、部位、症状は様々であり、一定の傾向は見いだせなかった。さらにGrossらの症例は腫瘤と正常腸管との交通はなく、air-fluid levelの出現は細菌感染が原因とされている⁹⁾。

以上より、今回提示した空気が流入した嚢腫状消化管重複症の所見に遭遇することは、日常臨床

Table 1 Alimentary tract duplications with "air-fluid level" appearance

Author	Year	Age	location	symptom
Gross	1981	5y	ileum	weight loss, diarrhea
Bhat	2001	5y	thoracoabdominal	melena
Wootton-Gorges	2002	0d	esophagus	neck swelling
Present case	2005	2d	ileum	abdominal mass, vomit

ではまれであると考えられた。しかし嚢胞内の air-fluid level の存在は、本症の診断に有意義であり、腹部腫瘤の診断時には念頭に置く必要が示唆された。

●文献

- 1) 松尾吉庸：消化管重複症。系統小児外科学（第2版）、岡田 正編、大阪、永井書店、2005、p529-531.
- 2) 山田高嗣、金廣裕道、吉村 淳、他：小腸軸捻転を併発した新生児腸管重複症の1例。日小外会誌 1996；32：926-931.
- 3) 高賢 樹、藤岡 進、加藤健司、他：腸閉塞を呈した乳児回腸重複症の1例。日臨外医会誌 1999；60：1018-1022.
- 4) 打波 大、横町 順、天谷博一、他：腸管重複症による胎便性腹膜炎の1例。日臨外医会誌 2001；62：1295-1299.
- 5) Borgnon J, Durand C, Gourlaouen D, et al : Antenatal detection of a communicating duodenal duplication. Eur J Pediatr Surg 2003 ; 13 : 130-133.
- 6) 原 裕子：腹膜およびその他の腹部異常。新生児・乳児の臨床画像診断、仁志田博司、河野 敦編。東京、医学書院、1999、261-276.
- 7) 大神 浩：消化管重複症。新外科学大系30c 小児外科Ⅲ。東京、中山書店、1991、219-227.
- 8) Karnak I, Ocal T, Senocak ME, et al : Alimentary tract duplications in children : report of 26 years' experience. Turk J Pediatr 2000 ; 42 : 118-125.
- 9) Gross P, Khadouri M : Image hydro-aérique d'une duplication iléale non communicante. Chir Pédiatr 1981 ; 22 : 51-54.
- 10) Bhat NA, Agarwala S, Wadhwa S, et al : Thoracoabdominal intestinal duplication with absent inferior vena cava. Pediatr Surg Int 2001 ; 17 : 540-542.
- 11) Wootton-Gorges SL, Eckel GM, Poulos ND, et al : Duplication of the cervical esophagus : a case report and review of the literature. Pediatr Radiol 2002 ; 32 : 533-535.