

症 例 報 告

食道閉鎖症に合併した先天性食道狭窄症の2例 —低圧バルンによる食道狭窄部描出法—

中川賀清, 植村貞繁, 中岡達雄

川崎医科大学 小児外科

Two Cases of Congenital Esophageal Stenosis Associated with Esophageal Atresia : Diagnosis Using Low Pressure Balloon Method

Yoshikiyo Nakagawa, Sadashige Uemura, Tatsuo Nakaoka

Department of Pediatric Surgery, Kawasaki Medical School

Abstract Two cases of congenital esophageal stenosis associated with esophageal atresia and our diagnostic method using a low pressure balloon are reported. Patients were diagnosed as esophageal atresia (Gross type C) and treated in other hospitals during the neonatal period. They had recovered well and had no complication until they reached the late weaning period. They presented with vomiting and stuffing food after eating a solid meal. Contrast esophagogram showed uncertain stenotic findings in the lower esophagus. They were referred to our hospital for further examination and treatment. We put a low pressure balloon catheter in the lower esophagus and inflated it with contrast medium. In both patients, a short segment of esophageal stenosis was clearly detected by this method. Through a left thoracotomy, we resected the stenotic esophagus and repaired it with end-to-end anastomosis. Postoperative courses were uneventful without stenotic symptoms. Pathological findings showed tracheobronchial remnants in the resected specimens. For the diagnosis of esophageal stenosis, our simple method effectively to demonstrates the length of the stenotic segment.

Keywords Congenital esophageal stenosis, Esophagogram, Esophageal atresia

はじめに

食道閉鎖症に合併した先天性食道狭窄症はまれな疾患である。狭窄部は食道下部に多く存在し、固形物の経口摂取が始まった頃に狭窄症状を認める。通常、食道閉鎖症の吻合部狭窄を疑い造影を行うが、吻合部より下部に食道狭窄を疑う部分を認める。このときの造影では狭窄の有無および範囲が不明確であり、下部食道狭窄が見逃されるこ

ともある。我々は狭窄部の範囲を正確にかつ安全に知る方法として、ゴム手袋の指の部分に栄養チューブの先端に絹糸で結びつけた簡単な装置を作った (Fig.1)。この中に造影剤を注入し指部分を拡張させると、正常食道は拡張するが、狭窄部は狭窄部として描出でき、簡単に診断することができた。この方法を用いてC型食道閉鎖症に合併した先天性食道狭窄症2例を診断したので若干の考察を加えて報告する。

原稿受付日：2005年12月5日，最終受付日：2006年1月23日

別刷請求先：〒701-0192 倉敷市松島577 川崎医科大学 小児外科学教室 中川賀清

症 例

症例 1 : 1 歳 3 ヶ月、男児

現病歴 : 39 週、体重 2980 g で出生、出生後、食道閉鎖症 (Gross C) と診断され、生後 2 日目に前

医にて根治術 (気管食道瘻閉鎖、食道端々吻合) を施行された。術後経過は順調で、術後の造影では吻合部に狭窄を認めなかった。その後、離乳食後期より嘔吐が出現し、吻合部狭窄を疑い、前医で造影 (Fig.2a) が行われた。吻合部より下部の

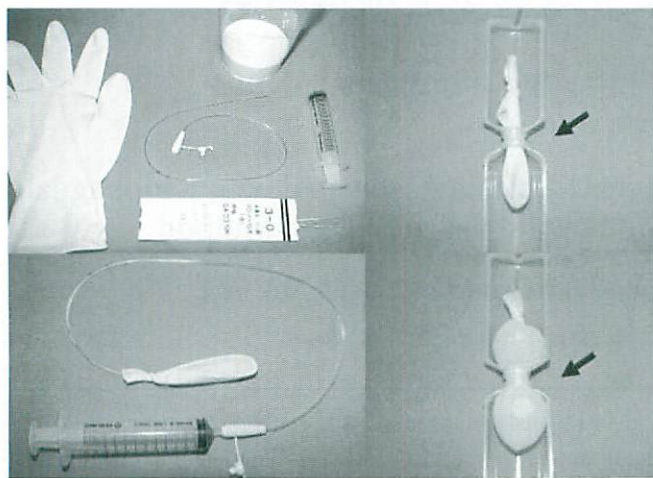
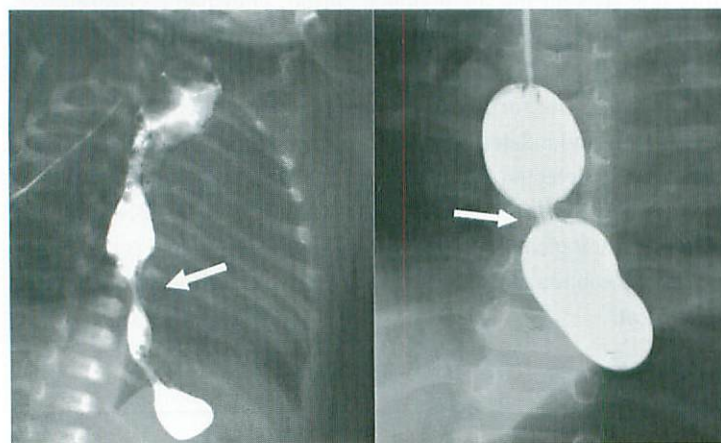


Fig.1 Low pressure balloon catheter made from rubber glove and NG tube (Atom 8Fr) is inflated with contrast medium in the lower esophagus.



a|b

Fig.2 Contrast esophagogram in case 1
a : Uncertain finding of stenosis in the lower esophagus.
b : Short segment of esophageal stenosis clearly detected by our method.

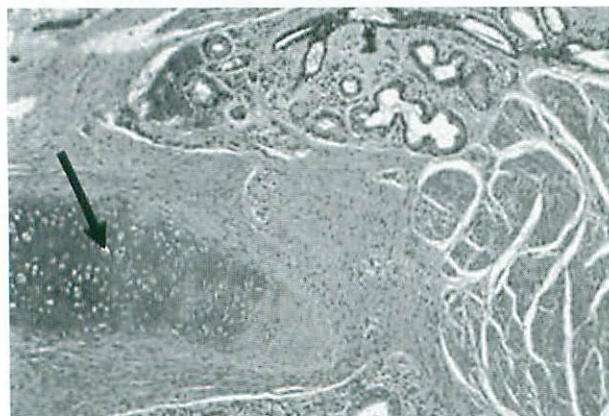


Fig.3 Tracheobronchial remnant detected in stenotic section.

考 察

食道狭窄(食道閉鎖部よりも肛門側)が疑われたが、はっきりしなかった。当院に精査加療目的で転院した。ゴム手袋の指の部分を栄養チューブの先端に絹糸で結びつけた簡単な装置に、造影剤を注入しバルン部分を拡張させると、正常食道部分は拡張するが、食道下部の狭窄部は5mm長の狭窄部として描出できた(Fig.2b)。食道狭窄症と診断し、1歳4ヵ月時、体重9.6kgで手術を施行した。狭窄部を同定し切除、食道口側と肛門側の端々吻合を行った。狭窄部の組織所見では気管軟骨の迷入を認め(Fig.3)、気管原基迷入型の食道狭窄症と診断された。術後経過は良好で、術後1年の現在、特に狭窄症状は認められていない。

症例2:1歳1ヵ月、男児

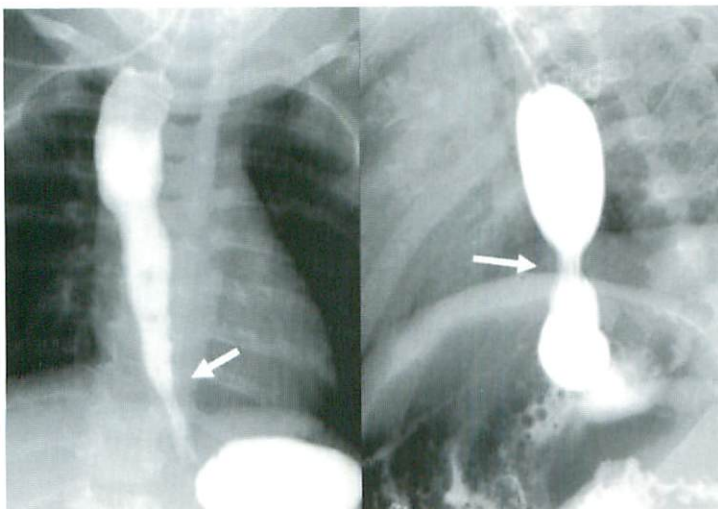
現病歴:35週、2588gにて出生。出生後、食道閉鎖症(gross C)と診断された。4生目に前医にて根治術を施行された。1歳前後から、食物塊がつかまるようになった。前医での造影(Fig.4a)では、食道下部の狭窄が疑われたが、断定できなかつた。家族の希望により、当院受診となった。当院での造影(Fig.4b)では、食道下部に8mm長の狭窄部を認めた。先天性食道狭窄症と診断し、1才2ヵ月時、体重8.9kgで手術を施行した。狭窄部を同定、切除し、端々吻合した。狭窄部には気管軟骨の迷入が認められた。その後の経過は良好で、3年経過した現在も狭窄症状はない。

先天性食道狭窄はまれな疾患であり、その頻度は25000から50000人に1人とされている¹⁾。病型は、気管原基迷入型狭窄、筋線維性狭窄、膜様狭窄の3つに分類され、このうち膜様狭窄は全体の数%とごく稀で、残りを前2者がほぼ同じ割合を占める。

気管原基迷入型狭窄は、胎生期に前腸より気管原基が分離する際に何らかの原因で、本来気管に分化すべき軟骨、気管支腺、上皮組織などの間葉性細胞が食道に残存し、そのまま食道下部に移動するために生ずるとされている。したがって狭窄は食道下部に起こる。また、筋線維性狭窄は食道の内輪筋の著明な肥厚が原因で、上部から下部のあらゆる部位に存在するが、中下部が多いとされている。膜様狭窄は食道粘膜が弁状に食道内腔に突出するために起こり、下部食道に多い。

症状発現の時期は病型によって異なり、気管原基迷入型は生後6ヵ月ごろの離乳期から、残りの2型はそれよりもやや早く発症するとされている。症状としては、繰り返す嘔吐、固形食の嚥下障害やそれによる成長遅延、誤嚥による気管支炎を呈する。また食道炎、食道潰瘍による出血、貧血が起こることもある。

食道閉鎖、鎖肛などの合併奇形を有することがあり、その頻度は約20%とされ、気管原基迷入



a | b

Fig.4

Contrast esophagogram in case 2
a : Uncertain finding of stenosis in the lower esophagus.
b : Segment of esophageal stenosis was clearly detected.

型での合併が多い。先天性食道閉鎖症を合併する例は、超低出生体重児例を含め本邦でも報告がみられる²⁻⁶⁾。狭窄は乳児期以降に診断されていることから、食道閉鎖の術中には下部の食道狭窄には気がついていないことになる。したがって食道閉鎖の根治術中に8Fr程度のネラトンチューブを下部食道盲端から胃に挿入し、下部食道に狭窄がないか確認しておくことが大切である。

診断は一般に食道造影が行われる。所見は狭窄部の性状によって急激に狭くなるか、なだらかに狭くなるかで分別され、それぞれ abrupt narrowing, taper narrowing と呼ばれる。気管原基迷入型狭窄、膜様狭窄は前者、筋線維性狭窄は後者が特徴といわれているが、不確実で³⁾、また病変の有無、病変部の範囲の正確な診断が、自験例のように明瞭でない。我々はゴム手袋と栄養チューブを用いて、拡張用バルンの方法に準じて、バルン部分(ゴム手袋の指部分)を狭窄部に留置し、造影剤を入れて拡張することにより、より鮮明に狭窄部を描出でき診断することができた。そして造影検査が短時間に行えるので、患児への被ばくの軽減や造影剤の使用量の低減という利点がある。

この方法の他の利点は、食道ブジーや拡張時に食道が穿破することもあるが³⁾、バルン部分が軟らかく、また低圧で均一に拡張するので、食道を損傷する可能性が少なく、安全である。同様な造影用バルンカテーテルをメーカーに依頼、試作してもらったが、バルン部分が硬く、均一に拡張することが難しいものであった。自作のカテーテルの材料はどの病院にもあるものであり、安価に作ることが可能である。また本検査は無麻酔で行うことができ、簡便に行える。しかしバルン部分はずれて、食道内に遺残する可能性もあり、しっかり固定し、慎重に挿入抜去する必要がある。

自験例のような食道閉鎖症術後の症例では、手術にあたり口側食道をあまり牽引できない、また肛門側も術後GERの発生の危険性があるため、なるべく剥離牽引しないほうが良いとされている。したがって術前に食道狭窄の範囲を正確に知っておくことが肝心で、術式の選択にも有用である。

食道狭窄部を描出するその他の検査法として

CTやMRIがあるが、造影検査と比べてどれだけ描出可能かは疑問である。近年、超音波内視鏡(EUS)を行い、狭窄部の検査や食道内の気管軟骨の描出に有効であったという報告⁴⁾もみられる。しかし小児では全身麻酔が必要となるため侵襲は大きく、まだ一般的でない。

まとめ

今回、食道閉鎖症に合併した先天性食道狭窄症を2例経験した。ゴム手袋と栄養チューブを用いた低圧バルン造影法は安価で簡便に行え、正確に病変範囲を描出することが可能であった。本法は、これまで内外の文献や著書^{7,8)}にも記載されていない独自の方法であり、診断および手術術式の選択に有用であった。

●文献

- 1) Vasudevan SA, Kerendi F, Lee H, et al : Management of congenital esophageal stenosis. *J Pediatr Surg* 2002 ; 37 : 1024-1026.
- 2) 井上幹大, 内田恵一, 大竹耕平, 他 : 超低出生体重児の先天性食道閉鎖症に合併した先天性食道狭窄症の1例. *三重医学* 2005 ; 48 : 93-97.
- 3) 川原央好, 窪田昭男, 井村賢治, 他 : Gross C型食道閉鎖症に合併した先天性食道狭窄症. *日小外会誌* 1991 ; 27 : 769-777.
- 4) Takamizawa S, Tsugawa C, Mouri N, et al : Congenital esophageal stenosis : Therapeutic strategy based on etiology. *J Pediatr Surg* 2002 ; 37 : 197-201.
- 5) 樋口章浩, 松岡由紀夫, 長尾和治 : Gross C型食道閉鎖症に合併した気管原基迷入型食道狭窄症の1例 : 本邦報告例における術式の検討. *日小外会誌* 1999 ; 35 : 755-759.
- 6) Maeda K, Hisamatsu C, Hasegawa T, et al : Circular myectomy for the treatment of congenital esophageal stenosis owing to tracheobronchial remnant. *J Pediatr Surg* 2004 ; 39 : 1765-1768.
- 7) Dillon PA : Esophagus. *Principles and Practice of Pediatric Surgery*, Ed by Oldham KT. Philadelphia, Lippincott Williams and Wilkins, 2005, p1023-1038.
- 8) Parker BR : The esophagus. *Caffey's Pediatric X-Ray diagnosis (9ed)*, Ed by Silverman FN. St. Louis, Mosby, 1994, p991-1028.