

胎生期の腸重積による回腸閉鎖症について

その一症例と発生機序

川崎医科大学 総合臨床医学

西本 隆重, 重本 弘定, 藤田 渉

同 小児科

河野 幸治, 片岡 直樹

(昭和58年1月21日受付)

Pathogenesis of Ileal Atresia from a Prenatal

Intussusception: A Case Report

Takashige Nishimoto, Hirosada Shigemoto

and Wataru Fujita

Department of Primary Care Medicine,
Kawasaki Medical School

Koji Kohno and Naoki Kataoka

Department of Pediatrics, Kawasaki Medical School

(Accepted on Jan. 21, 1982)

出生直後、肛門から白色の索状物を排泄した先天性回腸閉鎖症の一例を報告した。開腹すると回腸の閉鎖部の末梢側盲端内にポリープ様隆起物を有し、組織学的検討で白色索状物は壊死になっているが二重構造を示していた。そして盲端部のポリープ様隆起物は粘膜、粘膜筋板、固有筋層が回腸壁から移行してきており、その先端部は壊死となっている。以上の所見よりこの症例は胎生期に腸重積症が発症し、内筒が壊死となり、その大部分は脱落して肛門から排泄され、一部は末梢側盲端内にポリープ様隆起物として残存したものと考えられた。さらに胎生期腸重積症から腸閉鎖症への発生機序について仮説を立てた。

Immediately after birth, a white funiform mass, which was found in a histological examination to be necrotic and have a multilayered structure, was passed from the rectum of an infant with ileal atresia. Upon laparotomy, a polypoid prominence was found in the distal closed end of the ileum. This prominence was a projection of the mucosa, lamina muscularis mucosae and tunica muscularis from the ileal wall, and its tip was necrotic. From the above observations, it was thought that the intussusceptum resulting from prenatal intussusception became necrotic, and after detachment most of it passed from the rectum leaving as a remnant the polypoid prominence in the distal closed end of the ileum. It was proposed that the prenatal intussusception resulted in intestinal atresia.

はじめに

先天性腸閉鎖症の原因については古くより Tandler¹⁾ の腸管再開通障害説があり、現在でも十二指腸および空腸閉鎖症の一部の発生原因として認められている。しかし Louw²⁾ の動物実験以来胎生期の腸管の血行障害も先天性腸閉鎖症の原因になることが広く認められるようになった。胎生期の腸重積症による腸閉鎖症は古くは1888年の Chiari³⁾ の報告がある。しかし報告例は少なく、その発生過程および組織像の検索もあまりなされていない。

われわれは以前3例の回腸閉鎖症のいずれにも末梢側盲端内にポリープ様隆起物が付着し、その組織学的検討により腸重積症の内筒に相当することを証明した⁴⁾。

最近、腸重積症の内筒が壊死となった索状物を肛門から排出し末梢側盲端内にポリープ様隆起物をもった回腸閉鎖症を経験したので、回腸閉鎖症の発生過程についての考察を加えて報告する。

症 例

症 例: 生後3日目, 第2子, 男子。母親は妊娠7週で子宮筋腫の手術を受けた。予定日より5日早く出生, 生下時体重3,425g, 羊水は正常量で, 頭位自然分娩であった。胆汁性嘔吐と腹部膨満のために生後3日目某産院より転院してきた。

来院時所見: 体重3,170g, 脱水が著明であった。腹部は著明に膨隆し, 腸雑音は減弱していた。胸腹部立位単純X線撮影では腹腔内に遊離ガス像も石灰化像も認めず, 胃および小腸に多数の鏡面形成があり, 結腸内にガス像は全くなかった (Fig. 1)。ガストログラフインによる注腸造影で盲腸は正常に位置し, 細結腸の像はなかった。なおこの後, 胎便栓 (5×1.4cm) を先端に付けた長さ19cm, 直径0.7cmの灰白色で表面に輪状の皺襞のある円筒状の索状物を肛門より排泄した (Fig. 2)。以上の結果から回腸閉鎖症と診断し手術を行った。

手術所見: 小腸はトライツ靱帯から150cm

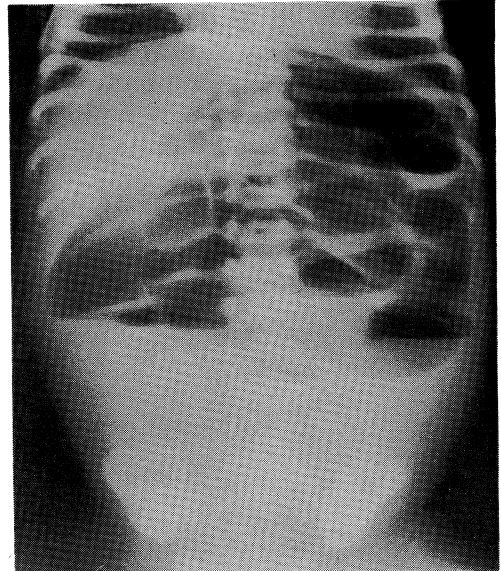


Fig. 1. Upright view. Dilatation of the small bowel with multiple fluid levels, but no gas shadows in the pelvis.

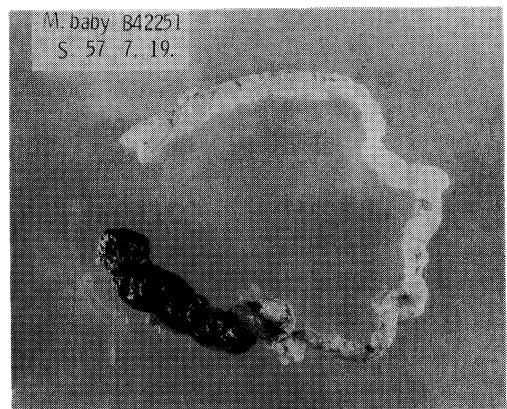


Fig. 2. Meconium plug (black) and necrotic intussusceptum (white) which was passed from the rectum after birth.

の部で拡張した盲端に終わり, そこより2cm離れて末梢側の盲端がある。ここから回盲弁までは90cmで, 両盲端間には索状物による連結はなく腸間膜はU字状に欠損していた。拡張した口側腸管36cmおよび肛門側腸管4.5cmを切除し, 端々吻合を行った。術後経過は良好であった。

切除標本肉眼所見: 口側腸管は直径4cmと著明に拡張し, 壁の肥厚がある。尖端は円形に

菲薄となり、この部には粘膜皺襞はなく平滑である。肛門側腸管の盲端部3cmの部は硬く触れ、その内腔に実質性のものの存在が考えられた。腸間膜反対側でひらくと盲端より1cmの腸間膜側粘膜面に長さ0.6cm、直径0.5cmの粘膜に覆われた隆起物があり、その先端に0.3cm×0.3cmの褐色の壊死物質を付着している (Fig. 3)。

切除標本組織学的所見：肛門側腸管内腔のポリプ様隆起物の基部は萎縮した小腸粘膜で覆われており、その基底部に石灰化巣がある。そ



Fig. 3. Resected specimen was opened at the antimesenteric side. A polypoid prominence was seen in the distal closed end of the ileum.



Fig. 4. Photomicrograph of the polypoid prominence. (×7.8, H-E stain)

して回腸の粘膜筋板と固有筋層は菲薄化はしているが連続性に隆起物内へ移行し、隆起物の基底部では固有筋層は欠損している。したがってこのポリプ様隆起物は腸管壁で構成されていることがわかる。隆起物の先端部は次第に壊死組織に移行している (Fig. 4)。肛門から排泄された白色索状物の輪切りの標本では二重構造を呈し腸重積の内筒と考えられるが、壊死組織のために組織学的にはっきりしたことはいえない。

考 案

1. 分 類

腸閉鎖症とは先天性異常に基づく腸管内腔の完全閉塞を意味し、腸狭窄症は不完全閉塞を意味する。どちらも同じ原因によって起こると考えられている。Louw⁵⁾は4型に分けている。

- 1) 腸狭窄症
- 2) 腸閉鎖症 I 型：膜様の閉鎖を持つもの。
- 3) 腸閉鎖症 II 型：口側および肛門側の盲端が索状物で連っており、同部の腸間膜は正常ないし V 字型に欠損しているもの。
- 4) 腸閉鎖症 III 型：両盲端は離れており、腸間膜は V 字型に欠損しているもの。

われわれの症例は 4) 型に属している。

2. 小腸閉鎖症の発生過程について

1900年 Tandler¹⁾は胎生5週から9週にかけて胎児の十二指腸は上皮の増殖により内腔は一時閉鎖し、正常では多数の空胞が生じ互いに融合して再開通するが、これが障害されて内因性十二指腸閉鎖症が起こると説明しており、多くの人に支持されている。しかし Evans⁶⁾はこの説では先天性腸閉鎖症の全ての型を説明するには不十分と考え、他の因子のあることを主張した。19世紀に入って胎児の腸管の血行障害によると考えられる腸閉鎖症が次々に報告されたが当時あまり認められなかった。しかし1955年 Louw²⁾は犬の胎仔での実験に基づき胎生期の腸管の血行障害が腸閉鎖症の原因であることを証明した。その後 Santulli⁷⁾は空回腸閉鎖症では、①小腸が短い、②閉鎖部より末

稍腸管にも胎便がある, ③閉鎖部の腸間膜に欠損がある, などは再開通説では説明できないとして Louw らの血行障害説を支持している. さらに Grosfeld ら⁹⁾は肛門側盲端内にポリープ様隆起を持つ腸閉鎖症を胎生後期の腸重積症によるものと報告し, その証拠として, ①成熟児である, ②末梢側腸管内に胆汁, 上皮細胞, 毳毛が存在する, ③合併奇形がない, ④メコニウム・イレウスの合併はない, ⑤回腸に多い, ⑥直腸より壊死物質の排泄がある, ⑦注腸造影で結腸の太さは正常に近い, ⑧末梢側盲端にポリープ様隆起がある, という8項目をあげている. われわれの症例は成熟児であり, 合併奇形や粘液粘稠症 (mucoviscidosis) でもなく, 回腸であり, 細結腸を認めておらず, 肛門より索状の壊死物質を排泄しており, ポリープ様隆起物の尖端の壊死物質と組織学的に一致していることより胎生後期の腸重積による回腸閉鎖であることが判明した.

3. 肛門側盲端内のポリープ様隆起物の組織学的検討

Chiari³⁾以後次々に腸重積による腸閉鎖症の報告があり, 本邦でも植田ら⁹⁾は末梢腸管に嵌入し壊死となった内筒を持つ腸閉鎖症を報告し, 1973年戸谷ら¹⁰⁾は本邦24例を集計しているが, 空回腸閉鎖症のうちで占める割合は少なく5%前後であると報告している. しかもこれらの報告例も末梢腸管内にポリープ様隆起物があるというだけで腸重積症によるとしているものがあり, 組織学的に詳細に検討したものは少ない. Gherardi ら¹¹⁾は末梢側盲端内にポリープ様隆起物があり組織学的にこれは粘膜に覆われ, 石灰沈着があり筋層を有していると報告し腸重積の内筒の残存物であると述べている. また Zachary¹²⁾は隆起物の中に石灰化した扁平上皮の層があるので内筒の遺残物であるとしている.

4. 胎生期腸重積症の治癒過程について

腸重積症は生後3カ月から1歳6カ月に発症し易い疾患である. Rachelson¹³⁾は新生児期の腸重積による回腸閉鎖症を報告し, 文献上

5,966例の腸重積症のうち18例(0.3%)が新生児期に発病し, 一方, 593例の腸重積非整復例のうち42%が auto-anastomosis により治癒したと述べている. そこで胎生期のような無菌状態であれば, このような自然治癒の頻度が相当高いと考えられる. 以上の文献的考察ならびに病理所見より Fig. 5 の様な胎生期腸重積症

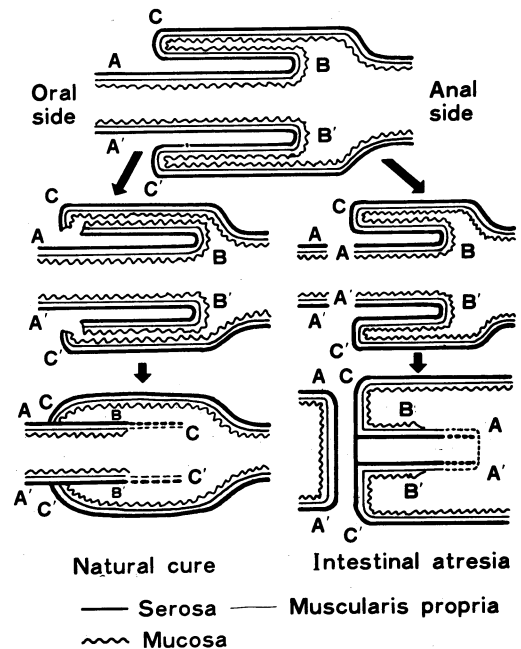


Fig. 5. A schema of the pathologic process of spontaneous recovery of prenatal intussusception.

の治癒過程を考えた⁴⁾. 胎生期に腸重積症を起こした場合腸間膜の血行障害を起こし腸の壊死を来す. A点で腸管が断裂すると腹膜炎を起こすが無菌的なので両端は閉鎖する. 肛門側ではA点は翻転してポリープ様となり尖端は壊死となる. したがってポリープ様隆起物は外側は粘膜に覆われ, 固有筋層を持つのが特徴である. 一方C点で腸管の壊死が起こり断裂すると肛門側へ翻転した腸は2筒性となり腸内容は腹腔内へもれず auto-anastomosis により治癒する. そして内筒の外側が漿膜, 内側が粘膜となり次第に萎縮して消失してゆく. これはC-B間またはA-B間のBに近い所で断裂が起こっても

auto-anastomosis が起こり治癒する。このように胎生期に腸重積症が起こっても後者のように自然治癒を起こす確率のほうが高いと推定される。

5. 胎生期腸重積症の頻度および原因

腸閉鎖症の頻度は Louw によると 3,000 人に 1 人、うち空・回腸は約 52% (うち回腸は 4/5) である。そのうち 5% 前後が腸重積症によると報告されている。しかし重本⁴⁾の症例 1 のような肛門側盲端の小さいポリープ様隆起物はかなり見落とされているということと、自然治癒の確率が高いということより胎生期には相当高い頻度で腸重積症が起こっていると考えられる。場所は回腸に多い。胎生期にメコニウム

が粘くて腸を刺激するために起こりやすいという説¹⁴⁾ や中腸の閉鎖症の 45% に合併する腸間膜固定異常が捻転や腸重積の原因になるという説²⁾ がある。われわれの症例は上記のどの説にも該当せず原因は不明と言わざるをえない。

おわりに

出生直後に肛門から胎生期に発症した腸重積の内筒の壊死となった索状物を排泄した先天性回腸閉鎖症の一例を報告した。閉鎖部末梢側盲端内にポリープ様隆起物を有しており、組織学的にポリープ様隆起物は腸管の構造を示していた。これらの所見から胎生期腸重積症から腸閉鎖症への発生機序についての仮説を立てた。

文 献

- 1) Tandler, I.: Zur Entwicklungsgeschichte des menschlichen Duodenum in frühen Embryonalstadien. Gegenbaur. Morph. Jahrb. 29: 187—215, 1900
- 2) Louw, J. H. and Barnard, C. N.: Congenital intestinal atresia. Lancet. 2: 1065—1067, 1955
- 3) Chiari, H.: Über eine intrauterin entstandene und von Darmatresie gefolgte Intussusception des Ileums. Prag. Med. Wschr. 13: 399—401, 1888
- 4) 重本弘定, 佐藤泰雄ら: 胎生期の腸重積による回腸閉鎖症について. 小外内 7: 827—832, 1975
- 5) Louw, J. H.: Congenital atresia and stenosis in the newborn: Observation on its pathogenesis and treatment. Ann. Roy. Coll. Surg. Eng. 25: 209—234, 1959
- 6) Evans, C. H.: Atresia of the gastrointestinal tract. Surg. Gynec. Obstet. 92: 1—8, 1951
- 7) Santulli, T. V. and Blanc, W. A.: Congenital atresia of the intestine. Ann. Surg. 154: 939—948, 1961
- 8) Grosfeld, J. L. and Clatworthy, H. W.: The nature of ileal atresia due to intrauterine intussusception. Arch. Surg. 100: 714—717, 1970
- 9) 植田 隆, 佐谷 稔: 腸重積症. 外診 9: 805—811, 1967
- 10) 戸谷拓二, 田淵勝輔ら: 子宮内腸重積症に起因した小腸閉鎖症 一邦集計 24 例から一. 日小外誌 9: 287—293, 1973
- 11) Gherardi, G. J. and Fisher, J. H.: Atresia of the small intestine produced by intussusception in utero. New Eng. J. Med. 264: 229—231, 1961
- 12) Zachary, R. B.: Intestinal obstruction. Progr. Pediat. Surg. 2: 57—72, 1971
- 13) Rachelson, M. H., Jernigan, J. P., Colonel, L. and Jackson, W. F.: Intussusception in the newborn infant. J. Pediat. 47: 87—94, 1955
- 14) Parkkulainen, K. V.: Intrauterine intussusception as a cause of intestinal atresia. Surgery, 44: 1106—1111, 1958