

胃の Pneumatic rupture を伴った先天性 食道閉鎖症の1手術例

大阪医科大学外科学教室（指導：麻田 榮教授）

佐々木進次郎・柘岡 進・村上洋司・福田勝次

〔原稿受付 昭和38年8月13日〕

A CASE OF CONGENITAL ESOPHAGEAL ATRESIA WITH PNEUMATIC RUPTURE OF THE STOMACH

by

SHINJIRO SASAKI, SUSUMU MASUOKA, YOJI MURAKAMI
and KATSUJI FUKUDA

From the Surgical Department of Osaka Medical College
(Director : Prof. Dr. SAKAE ASADA)

The patient, an 8-day-old baby girl, was brought to our clinic because of severe abdominal distension. Pregnancy had been complicated by hydramnios. Shortly after birth, excessive salivation was noted and all formulas were regurgitated. On the fourth day of life, slight abdominal distension was noted, and this increased progressively.

Physical examination revealed a relatively well nourished baby with marked abdominal distension accompanied by generalized tympany. Roentgenograms of the abdomen with the patient in the upright position showed a large amount of free gas in the peritoneal cavity and a pooling of the contrast medium in the esophagus.

A laparothoracotomy performed on the ninth day disclosed a perforation 0.5 cm in diameter at the anterior midportion of the stomach adjacent to the greater curvature and a tracheoesophageal fistula at the site of tracheal bifurcation. Although the operation was performed radically, the patient expired 48 hours later.

Autopsy showed marked gastric distension and pulmomic hemorrhage. Microscopic examination of the lungs and stomach revealed remarkable hemorrhage in the alveoli with a slight degree of pneumonia and considerable thinning of the gastric musculature near the perforation.

The cause of the perforation was considered as intragastric gaseous distension, in addition to the congenital thinning of the gastric wall. The death was attributed to the respiratory decompensation resulting from the hemorrhage and the consolidation of the lungs.

1941年 Haight¹⁾が先天性食道閉鎖症の一次的吻合に成功して以来、本症に対する外科医の関心はよにわか
に高まり、欧米においてはすでに多数の成功例がえら
れている。一方、本邦においても昭和35年若林²⁾、
植田³⁾等の報告にはじまり、相次いで成功例がえられ

るに至つた。

最近われわれは先天性食道閉鎖症に胃の pneumatic
rupture が合併した非常に珍しい症例を経験したので
報告する。

症 例

患者：中〇美，生後8日，女児

主訴：吐乳並びに腹部膨隆

現病歴：生下時体重2,750g，母親は経産婦，羊水過多症あり，妊娠10ヵ月で横位のため帝王切開により娩出，生後より口角に羊水様の分泌物がみられ，24時間目より授乳を開始したがすべて吐出した。そこで5%糖液の皮下投与を行ないながら経過を観察した。4日目より腹部膨隆並びに発熱を来し，8日目のレ線検査により気腹及び食道の通過障害を疑われ，当日直ちに当外科へ入院した。

家族歴：特記すべきものはない。

入院時所見：体重は2,700gで生下時と殆んど変わらず，全身状態は比較的良好。口腔内に分泌物を認めるが，咳嗽並びにチアノーゼはない。胸部では呼吸音が弱いのみで異常音は聴取されない。腹部は全般に著るしく膨隆し（図1），鼓音を呈し，腹壁静脈の怒張が

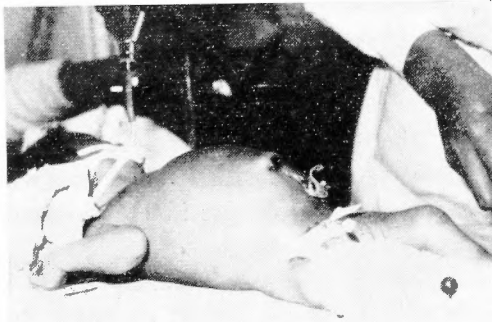


図1. 腹部所見：全般に著るしく膨隆している。

みられる。腸雑音は聴取されない。カテーテルを鼻腔より食道内に挿入するに約10cmの部位にて抵抗があり，それより先へ押し進めようとするときカテーテルが反転するのが感知された。

レ線検査成績：このカテーテルから76%ウログラフィン2ccを注入して撮影するに，カテーテルはI胸椎の高さで口側へ向つて反転し，造影剤は注入部位に停滞しており，すなわち，上部食道が盲端に終わっていることが確認された（図2）。また，胸，腹部の立位単純撮影では肺野に著変なく，腹部ではとくに上腹部横隔膜下にガス像を認め，明かにPneumoperitoneumの像を認めた。また，胃内に大量のガス像を認めたが，腸管内にはガス像は全く認められなかつた（図3）。

以上の所見より胃のPneumatic ruptureを信じた



図2. 食道造影：カテーテルは盲端で反転し，造影剤は注入部位に停滞している。

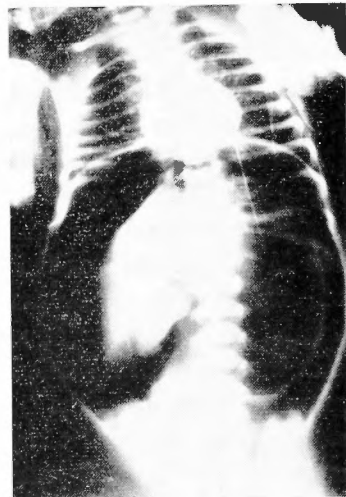


図3. 腹部単純撮影：腹腔及び胃内にガスが充満している。

先天性食道閉鎖症と診断，生後9日目の昭和38年1月18日手術が行われた。

手術所見：infant circleを用いての麻酔下に上正中切開にて開腹するに，大量のガスの排出をみ，腹部は一瞬にして陥凹せる状態となつた。腹腔内に胆汁の貯留はなく，後腹膜に浮腫を認めるのみで，その他の病的所見はみられなかつた。胃を検するに，胃体部前壁大彎側に3×3cmの漿膜の欠損があり，その中心部に小豆大の穿孔が認められ（図4），気管内加圧によりこの穿孔部から空気のもれるのが確かめられた。十二

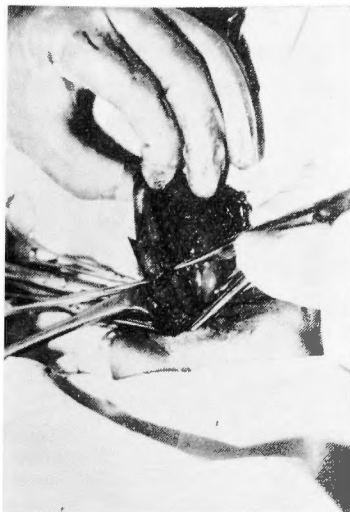


図4. 開腹所見：胃体部前壁大彎側に小豆大の穿孔があり，気管内加圧により空気がもれた。

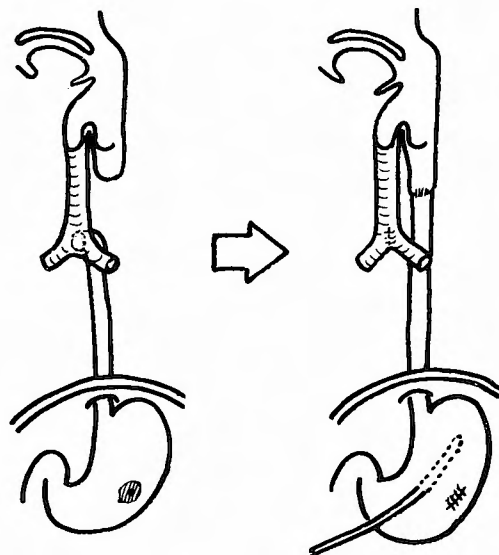


図5. 手術所見並びに術式。

た。

剖検所見：肺では，とくに右上葉は赤褐色を呈し，右気管支内に粘稠な赤褐色の分泌物が認められた。組織学的には肺胞内に強い出血がみられ（図6），また，

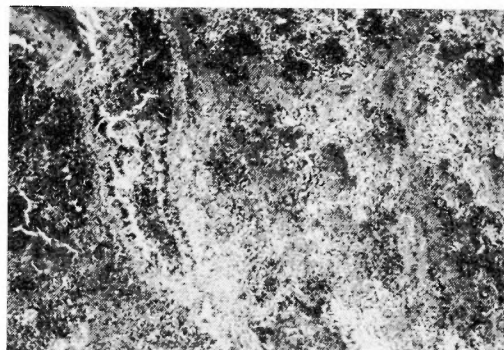
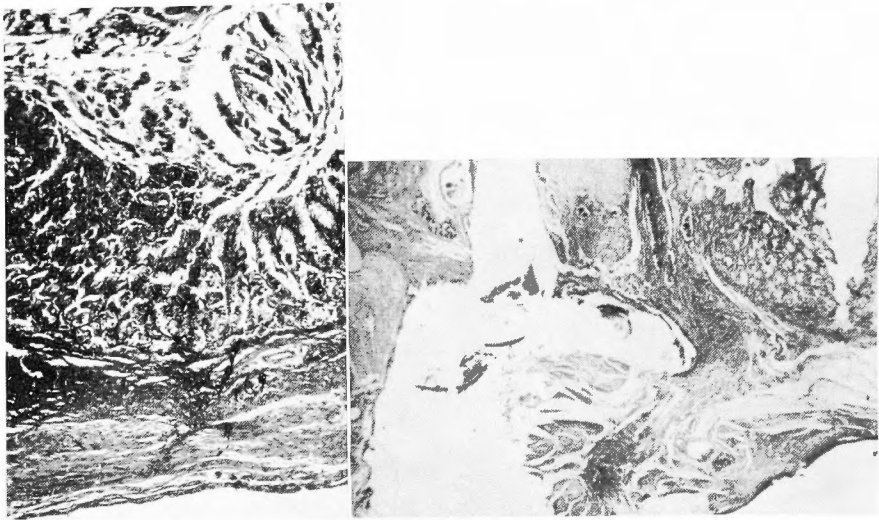


図6. 肺の組織像：肺胞内に著明な出血がみられる。（H. E. 染色，70×）

他の部位では軽度の肺炎と拡張不全の像が認められた。胃では著明な拡張がみられ，術後24時間目より注入した糖液は全てそのまま胃内に残存していた。肉眼的に胃粘膜は充血状を呈するも，潰瘍，出血等の所見はみられなかつた。組織学的には粘膜固有層並びに粘膜下組織に著明な鬱血及び出血がみられ，穿孔部周囲では健常部に比し筋層が極めて菲薄であつた（図7a, b）。心臓では心筋線維の萎縮，肝臓では肝細胞索の乱れと脂肪変性がみられた。その他腎，副腎，脾等には著変が認められなかつた。

指腸以下の腸管内にはガスが存在していなかつたが，幽門輪の肥厚はなく，胃を圧すると胃内の空気を容易に十二指腸へ移行せしめることが出来，すなわち，幽門部の通過障害は認められなかつた。胃穿孔部の周囲を切除した後，Albert及びLembertの二層縫合で閉鎖し，胃体部中央に胃瘻を造設して腹腔内の操作を終了した。次いで，右IV肋間で開胸し縦隔を切開するに，tracheoesophageal fistulaがCarinaの後面にあり，口側食道の盲端はCarinaの上方約2cmの部に存しており，Grossの分類のC型奇形であることが確認された。先ずこのtracheoesophageal fistulaの切断縫合を行なつた後，4-0絹糸を用いて上下食道の端々吻合を行なつた。吻合には全周に亘る結節全層縫合を行ない，前壁にはさらに1層のLembert縫合を追加した。胸腔内吸引用ドレーンを挿入，型の如く閉胸した。図5は手術所見並びに術式を示したものである。なお，手術所要時間は3時間であつた。

術後経過：術直後は自発呼吸なく，体温が35℃に下降していた。術後3時間で自発呼吸が現われ，体温は36.5℃に回復したが，補助呼吸を中止すると直ちにチアノーゼ，徐脈が現われるのでそのまま補助呼吸を続行した。24時間目頃より肺野にラ音を聴取し，分泌物が増量したが，気管内チューブを頻回に交換することによりことなきをえていた。その後抜管出来ぬままに一般状態は一進一退を続けた。48時間目に至り再び自発呼吸の停止をみ，徐脈及びチアノーゼを呈したので人工呼吸を行なつたが回復せず，そのまま遂に死亡し



(a) 健常部
 (b) 穿孔周囲部：右下方の筋層は健常部に比して菲薄である。
 (H. E. 染色×70)

図 7. 胃壁の組織像

考 察

先天性食道閉鎖症は1670年 Durston の記載にはじまり、1940年 Leven⁶⁾⁷⁾ 及び Ladd⁸⁾ は multiple stage operation により本症を手術的に治癒せしめた。次いで、1941年 Haight¹⁾²⁾ が上下食道の一次的吻合を行なう direct anastomosis に成功して以来、欧米においては多数の報告⁷⁾⁹⁾¹⁰⁾¹¹⁾¹²⁾ があり、この中約2/3 に対して direct anastomosis が行われ50%前後の成功率がえられている(表1)。一方、本邦においては若林によれば総数35例、direct anastomosis の行われたもの13例で、この中9例の成功例がえられている(昭和38年2月現

在)。従つて、direct anastomosis の手術成績はかなり良いといえる。

先天性食道閉鎖症の手術成績を不良ならしめる患者側の条件として、1) 未熟児であること、2) 他の奇形が合併していること、3) 合併症とくに肺炎にかかっていること、等が重要視されている。このことは、例えば Waterston¹¹⁾ が体重4ポンド以下の症例あるいは体重は4ポンド以上でも重症の奇形または肺炎を合併する症例では32例中2例(6%)の生存例をえたにすぎないと述べていること、また、Humphreys⁹⁾ が生下時体重1,800g以下の例では生存例がなく、死亡例の2/3に合併奇形を認めたといつていることから容易

表1 先天性食道閉鎖症の手術成績

報告者	全 例				一次的吻合施行例			
	年 度	総 数	生存数	生存率 (%)	年 度	総 数	生存数	生存率 (%)
Humphreys	1903~1952	136	33	24.3		69	26	37.7
Haight	1935~1957	201	86	42.8	1950~1957	77	41	53.2
Leven	1939~1952	103	56	54.5		68	43	63.2
Gross	1939~1952	233	109	46.8	1946~1952	151	88	58.3
Waterston					1946~1959	218	109	50.0
Helling					1950~1956	54	30	55.6
本邦(若林)	1913~1963	35	9	25.7	1960~1963	13	9	68.5

に窺い知ることが出来る。

さて、本症例は胃破裂を伴った極めて稀な症例で Surgery 本年3月号誌上に発表された Otherson¹³⁾ の報告に次ぐ実に第2例目の症例であるが、新生児期における胃の自然破裂自体がごく稀な疾患であつて、欧米においては Siebold (1825) の報告以来、Herbut¹⁴⁾、Greene¹⁵⁾、Braunstein¹⁶⁾、Vargas¹⁷⁾、Moore¹⁸⁾、Castolton¹⁹⁾、James²⁰⁾ 等の報告があるが、McComick²¹⁾ (1959)の集計でもなお74例を数えるにすぎず、本邦の報告例は本症例を加えて僅かに11例²²⁾²³⁾²⁴⁾²⁵⁾²⁶⁾²⁷⁾ である。

新生児期自然胃破裂の原因として Greene¹⁵⁾ は表2

表2 自然胃破裂の原因 (Greene 1953)

- | |
|--|
| 1) External pressure of the birth canal |
| 2) Distension of the stomach with or without obstruction |
| 3) Trauma of the mucosa (as by gavage tube) with infection |
| 4) Digestion and perforation |
| 5) Congenital absence of thinning of the muscle |

の如きものをあげている。この中消化性潰瘍によるものが最も多いとされ、Vargas¹⁷⁾ は50%がこの潰瘍に起因すると述べ、次いで、Herbut¹⁴⁾ により明かにされた先天性胃筋層欠除ないし發育不全が多く、Castolton¹⁹⁾ は40例中18例にこれを認めたと述べている。本症例においては、剖検所見より明らかな如く、穿孔部位に胃筋層の先天性發育不全が存在し、加うるに、tracheoesophageal fistula を介して大量の空気が吸い込まれ、胃内圧が高度に上昇して破裂したものと考えられるのである。

本症例の死因としては長時間に亘る人工呼吸により肺胞内出血を来し換気不全に陥つたことが主と考えられるが、自然胃破裂の死亡率が非常に高く、Moore¹⁸⁾ によれば31例(手術例)中23例(68%)、本邦においては11例(総数)中10例(90%)²⁴⁾ であることからみても、やはり胃破裂が合併したことが予後を一層不良ならしめたものであろう。しかしながら、本症例の如く食道閉鎖が存在する場合は胃内容による腹腔内汚染は軽度であり、早期に手術が行われていたならばあるいは救命の機会もあつたものと考えられ、当然のことながら早期診断、早期手術の重要性を痛感した次第である。

結 語

生後8日目の女児にみられた胃のPneumatic rupture

を伴った先天性食道閉鎖症の1手術例を報告した。かかる症例は極めて稀であり現在迄1例の報告をみるにすぎない。本症例における胃破裂は先天性胃筋層發育不全及び空気吸入による胃壁の過伸展に起因するものと推定された。

文 献

- 1) Haight, C., and Towsley, H. A. : Congenital Atresia of Esophagus With Tracheoesophageal Fistula, Extrapleural Ligation of Fistula and End-to-End Anastomosis of Esophageal Segments. Surg., Gynec. & Obst., **76**, 672, 1943.
- 2) Haight, C., and Mich, A. A. : Some Observation on Esophageal Atresias and Tracheoesophageal Fistulas of Congenital Origin. J. Thoracic Surg., **34**, 141, 1957.
- 3) 若林 修, 森田 健, 岡部郁夫, 小原 昭, 村上博俊, 知念昭男, 海老原正雄, 鈴木 太: 新生児における先天性食道閉鎖症の根治手術. 手術, **15**, 464, 1961.
- 4) 若林 修: 先天性食道閉鎖症. 外科治療, **5**, 666, 1961.
- 5) 植田 隆, 宮崎正夫, 鯨岡 寧, 中田 健: 先天性食道閉鎖症の本邦初の手術治験例を得て. 手術 **15**, 457, 1961.
- 6) Leven, N. L. : Congenital Atresia of Esophagus With Tracheo-esophageal Fistula. Report of Successful Extrapleural Ligation of Fistulous Communication and Cervical Esophagostomy. J. Thoracic Surg., **10**, 648, 1941.
- 7) Leven, N. L., Varco, R. L., Lannin, B. G., and Tongen, L. A. : The Surgical Management of Congenital Atresia of the Esophagus and Tracheocephageal Fistula. Ann. Surg., **136**, 701, 1952.
- 8) Ladd, W. E. : Surgical Treatment of Esophageal Atresia and Tracheoesophageal Fistula. New Eng. J. Med., **230**, 625, 1944.
- 9) Humphreys, G. H., Hogg, B. M., and Ferrer, J. : Congenital Atresia of Esophagus. J. Thoracic Surg., **32**, 332, 1956.
- 10) Gross, R. E. : The Surgery of Infancy and Childhood. Saunders Co., 1953.
- 11) Waterston, D. J., Caater, R. E. B., and Aberdeen, E. : Esophageal Atresia. Tracheoesophageal Fistula. A Study of Survival in 218 Infants. Lancet, **21**, 819, 1962.
- 12) Helling, P. M. : Anesthesia for Esophagenl Atresia. Lancet, **26**, 182, 1958.
- 13) Otherson, H. B., and Gregorie, H. B. : Pneumatic Rupture of the Stomach in a Newborn Infant With Esophageal Atresia and Tracheoesophageal Fistula. Surgery, **53**, 362, 1963.

- 14) Herbut, P. A. : Congenital Defect in the Musculature of the Stomach with Rupture in a Newborn Infant. Arch. Path., **36**, 91, 1943.
- 15) Greene, W. W., and Gose, D. F. : Perforation of the Stomach in the Newborn. Am. J. Dis. Child., **85**, 47, 1953.
- 16) Braunstein, H. : Congenital Defect of the Gastric Musculature With Spontaneous Perforation. Report of Five Cases. J. Pediat., **44**, 55, 1954.
- 17) Vargas, L. L., Levin, S. M., and Santulli, T. V. : Rupture of the Stomach in the Newborn Infant. Surg., Gynec. & Obst., **101**, 417, 1955.
- 18) Moore, J. B., and Chan, L. : Spontaneous Rupture of the Stomach in the Newborn. Surgery, **42**, 484, 1957.
- 19) Castoleton, K. B., and Hatch, F. F. : Idiopathic Perforation of the Stomach in the Newborn. Arch. Surg., **76**, 874, 1958.
- 20) James, D. H. : Spontaneous Rupture of the Stomach. J. Pediat., **58**, 849, 1961.
- 21) McComick, W. F. : Rupture of the Stomach in Children, Review of the Literature and a Report of Seven Cases. Arch. Path., **67**, 416, 1959.
- 22) 矢内原啓太郎 : 同仁医学雑誌, **13**, 209, 昭14.
- 23) 庄司 間, 桂島良知, 菅野安人, 野田起一郎, 平間正義 : 二卵性双胎に見られた新生児胃穿孔例について. 日本消化器病会誌, **51**, 201, 昭29.
- 24) 玉井研吉 : 新生児特発性胃破裂の治験例. 産科と婦人科, **22**, 639, 昭30.
- 25) 佐々木正彦, 鈴木宗三, 村山洋平, 中川 勳, 山中薫子 : 新生児胃穿孔の1手術例. 臨床消化器病学, **7**, 34, 昭34.
- 26) 八神喜昭 : 新生児胃穿孔の1例. 産科と婦人科, **29**, 1088, 昭37.
- 27) 若林 修 : 小児外科, 手術の限界. 臨床外科, **18**, 103, 昭38.