

症 例

乳児にみられた横隔膜レラキサチオの1例

大阪市立大学医学部第2外科学教室（主任：白羽弥右衛門教授）

門 脇 宏・光 吉 聖・朝 倉 保
田 中 公 一 郎・岩 本 洋 三

〔原稿受付 昭和38年4月24日〕

A CASE OF CONGENITAL DIAPHRAGMATIC EVENTRATION

by

HIROSHI KADOWAKI, KIYOSHI MITSUYOSHI, TAMOTSU ASAKURA,
KOICHIRO TANAKA and YOZO IWAMOTO.

From the Department of Surgery, Osaka City University Medical School

A six months old girl entered the hospital with complaints of severe cough and vomitings. Chest X-ray revealed unusually high position of right half of the diaphragm and under which a remarkable intestinal gas shadow were noticed.

A repairing procedure by means of plication of the right diaphragm was performed through a right transpleural approach. Postoperative fluoroscopic examination disclosed fairly normal movements of the right diaphragm without any sign of paradoxical motions. The postoperative course of the patient was uneventful, she was discharged on the 21st postoperative day.

Microscopic specimen of the right diaphragm composed exclusively of collagen fibers, several specific stains revealing none of the muscle fibers.

Clinico-pathological considerations on the diaphragmatic eventration are briefly reviewed.

横隔膜レラキサチオは、余り頻度の高い疾患ではないが、小児に多くみられる横隔膜ヘルニアと類似した病態生理学的特徴を備えた疾患として、小児外科では重要な疾患の1つである。最近、われわれは、生後6カ月の乳児に本症を見出し、経胸的手術を行ない、これを全治せしめた1症例を経験したので、ここに報告し、文献的にも、二、三の考察を加えてみたい。

症 例

患者：は生後6ヵ月の女児。咳嗽と吐乳とを主訴と

して来院。

患児は第1子で、家族歴に特記すべきものはない。在胎月数10ヵ月、分娩は正常、生下時体重2,400g、妊娠中の母親は、悪阻が分娩日まで続いたということである。

現病歴：新生児期に吐乳、チアノーゼ、肺炎などをきたしたことはなく、順調に育っていたが、生後3ヵ月頃から、時々咳嗽発作をみるようになった。感冒として治療をうけていたが、一向に軽快せず、当科受診の約1週間前から、ますますこれが激しくなつてき

た。また、咳嗽発作のはじまつた頃から、1日2～3回吐乳をみるようになり、最近次第にその回数が増えてきた。しかし、吐物に胆汁を混じたり、または噴水状吐乳も来したことはなく、腹部膨満を伴うこともなかった。

生後4ヵ月頃、約2週間にわたり便秘に陥り、毎日浣腸をくり返したが、排便のみられなかつたことがあるという。しかし、最近では毎日規則的に便通をみるようになっていた。

昭和37年11月2日、咳嗽と吐乳とを主訴として本学小児科を受診、胸部レ線検査をうけたところ、右肺野に異常陰影のあることを指摘され、ただちに当外科に紹介された。

現症：体格はやや小さく、栄養は中等度、脱水やチアノーゼはない。胸部は対称性であるが、呼吸は浅く、やや促進している。心濁音界はやや左方に移動、心音、左肺野に聴診上異常を認めない。しかし、右肺上部に乾性ラ音がきかれ、また右肺中野に明らかな腸雑音を聴取しえた。腹部は陥凹し、いわゆる scaphoid abdomen を呈している以外には、理学的に異常を認めない。

胸部レ線像では(写真1, 2)、縦隔は左方に移動し、右肺中、下野には腸内ガス影と連続性のある著明なガス像とが認められた。また、右肺上野には、気管支肺炎の像もみられる。

以上の所見から、まず当然、右 Bochdalek ヘルニアが疑われたが、右肺野第2肋骨の高さにおいて、比較的鮮明なアーチ状の陰影があること、さらに、経過が



写真 2

比較的長く、かつ緩慢であることを考慮し、比較的稀ではあるが、ヘルニア嚢をもつた Bochdalek ヘルニアあるいは横隔膜レキサチオを強く疑った。

手術所見：サイクロプロペンによる気管内麻酔下には、右第7肋間開胸を行なつた。胸腔内に貯留液はなく、胸膜の肥厚、癒着もみられない。横隔膜を精査したところ、その欠損部はなく、右横隔膜頂部を中心に、直径約13cmの部分がセロファン状に薄くなり、胸腔に向つて膨出していた。この膜を透して、腹腔内臓器を透視しうる程度であつた。しかし、横隔膜の周辺部は厚く、筋層が十分に保たれていた。肺は上方に圧排さ

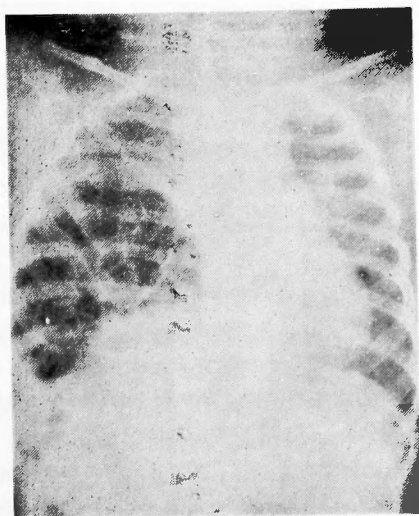


写真 1

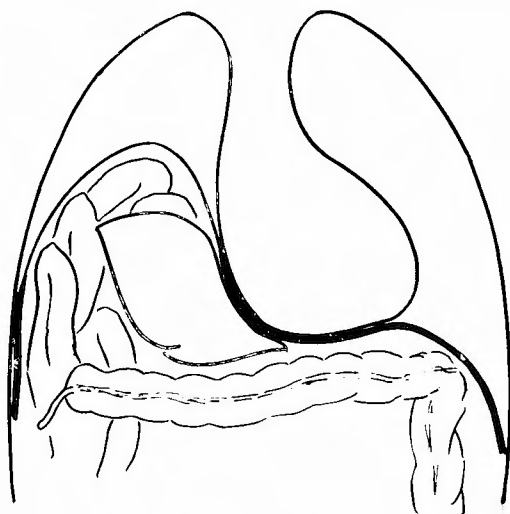


図 1

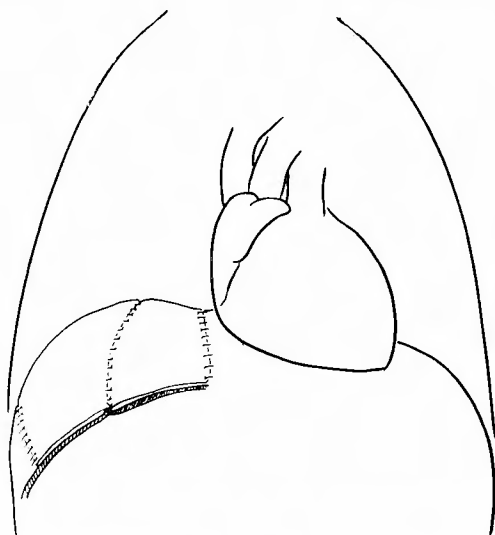


図 2

れ、下葉上区は無気肺状であつたが、他に肉眼的異常がなく、分葉異常も認められなかつた。そこで、菲薄化した横隔膜の範囲に一致し、その穹窿部において前後方向に切開してみると、このなかには肝右葉、小腸、廻盲部が含まれており、腸管回転不全をも合併していることがわかつた。しかし、腹部臓器互間の癒着は全く存在しなかつた(図1)。そこで、筋弛緩剤をもちいて筋肉を十分に弛緩させたところ、これらの腹部臓器を容易に腹腔内に還納することができた。ついで、横隔膜の修復、補強のために、まず、筋線維の充分に保存されている横隔膜切開縁の基底部分において、絹糸により前後に一系列の mattress 縫合を行なつて横隔膜を縫合閉鎖し、同時に正常位にまで下降せしめた。ついで、余剰の薄い横隔膜部をこの上に重層し、全体として横隔膜の二重々層形成術を施した(図2)。

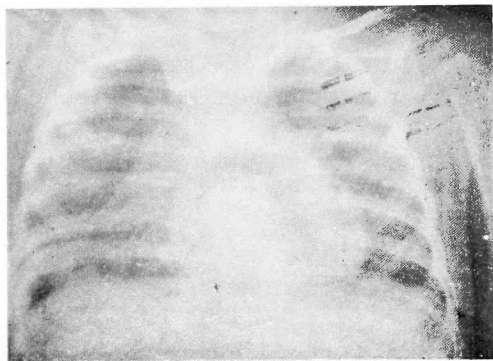


写真 3

術後経過・吐乳、咳嗽発作はただちに消失、胸腔内ドレーンを術後3日目に抜去した。術後7日目のレ線像(写真3)では、縦隔の移動は消失し、肺野は清明で、再膨脹もよく、また横隔膜は正常位に下降している。術後17日目、レ線透視下に右横隔膜の運動状況を観察したが、奇異運動は認められず、運動制限もなく、全く正常であつた。術後3週間に全治退院した。

組織学的所見：手術時採取した菲薄化した横隔膜の切片を組織学的に検索してみると、ヘマトキシリン・エオジン染色、ファンギーソン染色、アザン・マロリー染色のいずれの染色法によつても筋線維を全く見出しえず、膠原線維のみから成つていた(写真4)。

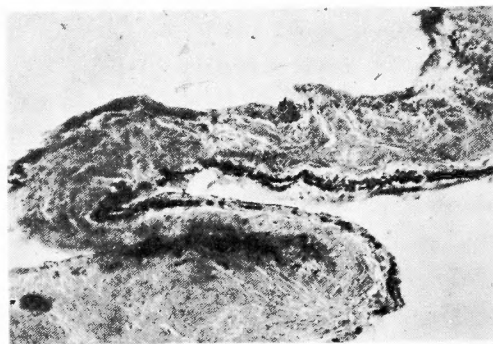


写真 4

考 按

横隔膜レキサチオは、Sanford によれば、Petit (1774) による剖検例の報告にはじまり、堀内によれば、Cruveilhier (1829) が本症に対して Eventratio diaphragmatica、さらに Bergmann (1913) は、Relaxatio diaphragmatica と名付けたという。本邦では、後者の名称が一般に用いられているようである。横隔膜レキサチオとは、片側の横隔膜が萎縮、菲薄となり、胸腔内に向つて異常に高く挙上された病的状態をいい、横隔膜ヘルニアとは、横隔膜の連続性が保たれ、かつ欠損部のない点が異つている。通例は、横隔膜の発生異常のために、先天的に発生したこれらの病的状態を横隔膜レキサチオと呼ぶのであるが、広義には、後天的に横隔膜神経麻痺により発生したものを、いわゆる acquired eventration として、一括して本症のなかに含ませることもある。本症の発生頻度は、Chin らによれば、英国 Southampton and Portsmouth 地区での5年間の成人の集団検診で412,000人中32例

表 1

Incidence of Congenital Diaphragmatic Hernia
in Infants and Children at the Children's
Memorial Hospital : 1945-1960

Type	Operated	Non-operated	Number	%
Bochdalek	47	3	50	65.0
Morgagni	2	—	2	2.6
Hiatus hernia	8	—	8	10.4
Short esophagus	6	1	7	9.0
Eventration	8	2	10	13.0
Totals	71	6	77	100.0

(Baffes, による)

がみられたという。また, Schaffer も成人の集団検診では, 10,000 人に 1 人の割合で見出されると述べている。小児における横隔膜ヘルニアと本症とが, どの位の頻度でみられるかを示す 1 つの例として, Chicago の Childrens Memorial Hospital の 15 年間の統計 (表 1) があるが, Bochdalek ヘルニアについて多くみられている。本邦では, 堀内が, 大正 3 年から昭和 29 年までの報告例を集計したところによると, 129 例が報告されており, このうち 26% (33 例) は 5 才以下の乳幼児にみられている。これに対して, 横隔膜ヘルニアの報告例は 177 例で, 5 才以下の症例は 45% であつたという。

横隔膜レキサチオの大部分は, 先天性におこっているが, その発生機序は, なお詳かでない。胎生の 8~10 週に横隔膜が形成されるにさいし, まず pleuroperitoneal fold が形成され, この両葉間に筋板から発生した筋線維が発育, 侵入するわけであるが, このさい, muscular migration が不完全であれば, 横隔膜の形成障害がおこるものとみなされている。この結果, 腹腔内腸圧と胸腔内陰性とのために, 薄弱な横隔膜が腹腔内に挙上されるに至るものと考えられている。

横隔膜レキサチオの発生側は, Bochdalek ヘルニア同様, やはり左側に多い。Chin らの調査では, 本

表 2

横隔膜レキサチオ発生側

報 告 者	左 側	右 側
堀 内	47	19
Reed and Borden	165	18
Chin et al	35	3

症 38 例中 35 例が左側に発生していたといい, また, Reed and Borden (1935) の調査では 183 例中 165 例が左側であつたという (表 2)。

胸腔に向い挙上された横隔膜穹窿部の高さは, もちろん, 症例により区々であるが, 本邦 95 例に関する堀内の調査では, 表 3 のごとく, 大部分が第 4 ないし第 3 肋間に及んでいた。

表 3

横隔膜穹窿部の高さ

第 1 肋 間		
第 1 肋 間	_____	1
// 2 //	_____	8
// 3 //	_____	33
// 4 //	_____	37
// 5 //	_____	15
// 6 //	_____	1
		計 95
		(堀内, 19)

いわゆる acquired eventration は分娩外傷, 胸腔内腫瘍, 胸膜炎, 神経炎, 手術などを原因とする横隔膜神経麻痺によるものである。Chin らによると, この型のものでは, 横隔膜の構造がさきへのべた先天性のものとは全く異なり, その構成は正常の横隔膜と異なるところがなく, 単に筋組織に萎縮のあるのが, 唯一の病的所見である。これに対して, 横隔膜神経を刺激しても, もちろん, 横隔膜の収縮はおこらない。これに反して, 先天性のものは, 横隔膜神経の刺激により活発に収縮するという。

症状: 臨床症状の軽重は, 横隔膜の挙上程度と, これに由来する 2 次的病変のいかに左右される。Sanford によれば, 本症は横隔膜ヘルニアとは異なり, 無症状のものが多く, 症状を示すばあいでも, その発症は緩徐であるという。

主要症状は, 腹部臓器の転位, intestinal angulation などによる胃腸症状, 縦隔の移動, 心大血管転位による循環器症状, 肺の圧迫, 虚脱, 感染などに由来する呼吸器症状などに 3 大別される。一般的にいつて, 本症は, 横隔膜ヘルニアとは異なり, 大量の腹部内臓が腹腔内に圧入されている状態ではないから, 直接, 生命に対する危険は少ないはずである。しかし, 本症をもつ新生児ないし乳児は, 心肺機能障害のために死亡することもある。Bisgard は, 新生児期における肺炎などによる死亡例のなかに, 本症によるものがかなりあるのではないかと推定している。

Sanford は、本症に由来する呼吸器症状を示す新生児、乳児に対しては、とくに注意が肝要で、これらのすべてが、手術の適応になると述べている。

診断：理学的には、患側胸壁の呼吸運動増加 (Hoover あるいは Korn 氏症状) が常にみられるという。診断は、通例、胸部レ線像をみれば容易であるが、横隔膜ヘルニアとの鑑別が、非常に問題になる。その鑑別点として、片側横隔膜の画く smooth unbroken, elevated curve が本症を診断するうえでの cardinal diagnostic feature であるとされている。したがって、正面像のみならず、常に側面像をも観察する必要がある。すなわち、横隔膜ヘルニアと異なり、挙上された横隔膜が形成する definite arched line よりも下方に、腹部内臓をみる点にある。しかし、この点で鑑別することは必ずしも容易でなく、疑わしいばあいには、気腹術を行なつてみる必要がある。本症は左側に好発するので、このさい、気腹を行なえば、胃泡と横隔膜陰影とを分離して、いわゆる2重弧像を確認すれば、本症を確認することができる。なお、肺外腫瘍、壁性膿瘍、先天性肺嚢腫、postpneumonic pneumatocele などをも、一応は鑑別診断上考慮しなければならない。横隔膜神経麻痺によるいわゆる acquired eventration との鑑別には、レ線透視による横隔膜の奇異運動の有無が重視されている。すなわち、Chin らによると、先天性のものでは、吸気時横隔膜周辺部の peripheral muscular ring がまず収縮し、下降する。eventrated portion は、はじめはむしろ paradoxical manner で上方に挙上される。これは吸気による腹圧の上昇と胸腔内陰圧の増加によるものであろう。しかし、やや遅れて eventrated portion も、結局は常に downward 下降する。このように、2段階の運動を営む。これに反して、後天性のものでは、終始、paradoxical に運動するという。しかし、必ずしも両者の間に、このように明確な相異が認められるとはかぎらず、先天性のものでも、広汎な筋成分の欠損があるばあいには、やはり奇異運動がみられる。結局、奇異運動の有無は、筋成分欠損の程度を推定する手がかりになるにすぎないとの見解をとるものもある。

治療：欧米においても、横隔膜レキサチオは手術不能の疾患であるとの考えが長く支配的であつたが、近時、乳幼児に対しても積極的に手術が行なわれるようになった。高橋 (1960) によれば、本邦では中谷 (1944) がはじめて本症に対して横隔膜縫縮術を行なつて以来、15例の手術的修復が行なわれているとい

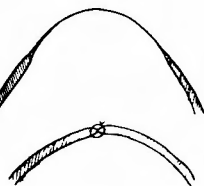
う。

本症の手術適応についての明確な意見はないが、少なくとも小児で、なんらかの症状、とくに心肺系の症状を示すばあいに、積極的に手術を行なうべきである。手術の目的は、横隔膜を正常位に整復下降せし

横隔膜レキサチオの修復術

1. 切除縫合法

(Eggers, 1931)



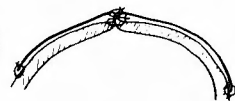
2. 縫縮術

(Lerehe, 1927)



3. 三重々ア形成術

(高瀬, 1953)



4. 三重々ア形成術

(Butsch & Leahy, 1950)



5. 自家組織片による補填

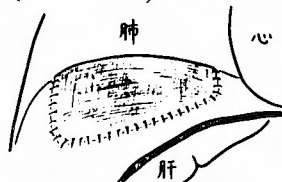
a. 遊離組織片

皮膚、筋膜 (Geever, 1952)

b. 有茎脂肪筋片 (Hartle, 1954)

6. 人工補填材料による補強

a. タンタルム網 (Monahan, 1951)



b. 三重々ア形成術とタンタルム網

(Sanford, 1953)

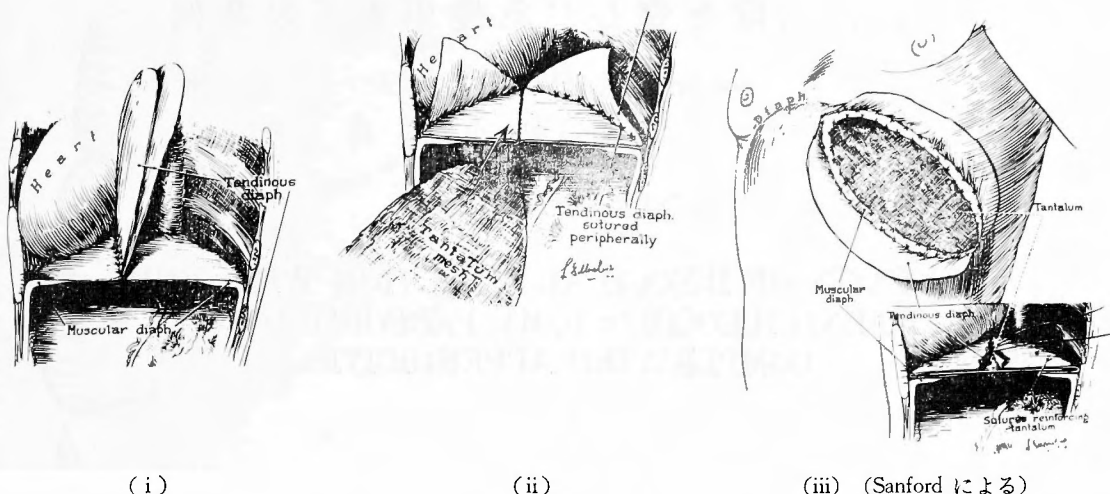


図 4

め、かつその補強処置を行なつて、心肺機能の改善と、消化管の正常位への整復を計ろうとするものである。これに対し、堀内、Monahan, Sanford らによれば、従来つぎのごとき各種の術式がこころみられている。

1. 切除、縫合 (Eggers, 1931) 菲薄な部分を切除したのち、筋性の辺縁部を縫合閉鎖するものである。これは筋成分の欠損が小範囲で、限局性のもののみ用いる方法である。

2. 縫縮術 (Lerche, 1927) 前者と同様、筋成分欠損が小範囲にとどまるものに用いられる。

3. 二重々層形成術 (高瀬, 1953) これも、筋成分の欠損が余り大きくないものに用いられる方法である。

4. 三重々層形成術 (Butsch and Leahy, 1950) 筋肉欠損が広汎なばいにも用いる方法である (図3)

5. 自家組織片による補填

i) 遊離組織：皮膚、広筋膜 (Geever, 1952) などが用いられたが、充分の大きさの移植片が常に得られるとはかぎらない。

ii) 有茎淵背筋弁 (Hartle, 1954)

6. 人工補填材料による補填 タンタルム網 (Monahan, 1951) のみ、あるいは三重々層形成術とタンタルム網 (Sanford, 1953) (図4, 5) を用いる。

症例に応じて、上記術式のいずれかを適切に選び、あるいは組合わせて行なうことにより、本症の外科的治療に、よい成績を期待できるものとする。

結 語

生後6ヵ月の女児にみられた先天性横隔膜レキサチオ

チオの症例を経験し、経胸的に横隔膜の二重々層形成術を行なつて全治せしめえた。あわせて、横隔膜レキサチオについて、文献的に二、三の考察をこころみた。

ご指導、校閲を賜わった恩師白羽弥右衛門教授に感謝する。

本論文の要旨は、昭和37年12月15日第154回大阪外科集談会で発表した。

文 献

- 1) Baffes, T. G. : Pediatric surgery, 259 Year Book Medical Publisher, Chicago, 1962.
- 2) Bigard, J. D. : Congenital eventration of the diaphragm. J. Thoracic Surg., **16**, 484, 1947.
- 3) Chin, E. F., et al. : Surgery of eventration of the diaphragm. J. Thoracic Surg., **32**, 6, 1956.
- 4) 堀内藤吾他：横隔膜レキサチオ——外科療法を中心として——, 胸部外科, **9**, 848, 1956.
- 5) Monahan, D. T. : Eventration of the diaphragm repaired with tantalum mesh. New England J. of Medicine. **244**, 474, 1951.
- 6) Ravitch, M. M., et al. : Lesions of the thoracic parietes in infant and children. Surgical Clinic, N. America. **32**, 1397.
- 7) Sanford, M. C. : Eventration of the diaphragm repaired utilizing tantalum mesh. J. Thoracic Surg., **25**, 422, 1953.
- 8) Schaffer, A. J. : Diseases of the Newborn 145 W. B. Saunders Co., Philadelphia and London, 1960.
- 9) 高橋喜久夫他：横隔膜レキサチオの手術療法. 臨床外科, **15**, 761, 1960.