

鎖肛を伴わない直腸隆前庭瘻

—— 症例報告と成因分析 ——

新潟大学小児外科

張 明磊・岩淵 眞・大沢 義弘・内山 昌則
内藤 真一・松田由紀夫・八木 実

A Case of Rectovestibular Fistula Without Anal Atresia

Minglei ZHANG, Makoto IWAFUCHI, Yoshihiro OHSAWA, Masanori UCHIYAMA,
Shinichi NAITOH, Yukio MATSUDA and Minoru YAGI

*Department of Pediatric Surgery,
Niigata University School of Medicine*

We report a 3-year-old girl of anovestibular fistula without anal atresia operated by vestibulo-anal pull-through method. The etiology, treatments and the operative procedure for this disease are discussed in this paper. It is difficult for us to diagnose whether the fistula is congenital or acquired. But the diagnosis of congenital or not is important for the selection of the treating method. Because congenital anovestibular fistula needs an operation ultimately after conservative treatment. The vestibulo-anal pull-through method is recommended for the operative procedure, moreover the patient age above two years old is suitable for the operation.

Key words: anovestibular fistula, perineal canal, anal fistula, anorectal malformation
直腸隆前庭瘻, 痔瘻, 鎖肛, 直腸肛門奇形

I. はじめに

鎖肛を伴わない直腸隆前庭瘻の成因に関しては1965年以来、多くの論文がみられる^{1)~9)}。本症において成因を鑑別することが重要なのは、一般的に後天性の乳児痔瘻では保存的療法が主になる^{10)~13)}のに対して、先

天性の perineal canal では、手術的療法が必要となるためである。しかし、臨床的に診断を確定することは困難な場合が多い。当科では、1977年より、本症3例を経験しているが、今回われわれは最近の1例を中心に報告し、本症の成因および治療について若干の考察を加える。

Reprint requests to: Minglei ZHANG,
Department of Pediatric Surgery,
Niigata University School of Medicine,
Asahimachi-dori 1-757, Niigata City,
951, JAPAN.

別刷請求先: 〒951 新潟市旭町通1番町757
新潟大学小児外科 張 明磊

II. 症 例

女兒，3歳，在胎38週，生下時体重3,195g，正常分娩，生後20日頃より，外陰部の発赤，腫脹があり，さらに生後30日頃より，外陰部よりの排便が認められ，外陰部の炎症も改善しないため，当科に入院し，鎖肛を伴わない直腸膣前庭瘻と診断された．局所洗浄と成分栄養剤の投与で症状は軽快し，一時退院した．しかし瘻孔が自然閉鎖しないため，1992年10月，3歳時に手術目的で当科へ再入院した．

現症：肛門の位置や形状には異常がなく，肛門括約筋の緊張も良好で，膣前庭部の正中に瘻孔の開口がみられ，周囲は軽度陥凹していた（図1）．瘻孔の前庭側より，ゾンを挿入すると，瘻管は肛門管の12時の歯状線直下に通じていた（図2）．瘻管長は8mmであった．

手術および経過：vestibulo-anal pull-through 法¹⁴で瘻管摘出を行った．術後経過は順調で，7日目より経口投与を開始し，9カ月を経過した現在，再発を認めていない．

病理所見：瘻管内面は重層扁平上皮で覆われ，炎症反応はほとんど見られなかった（図3）．

1年以上自然閉鎖しなかったという病歴と摘出瘻管内面には炎症反応はほとんどみられず，重層扁平上皮がみられたことから本症は先天性の perineal canal と考えられた．

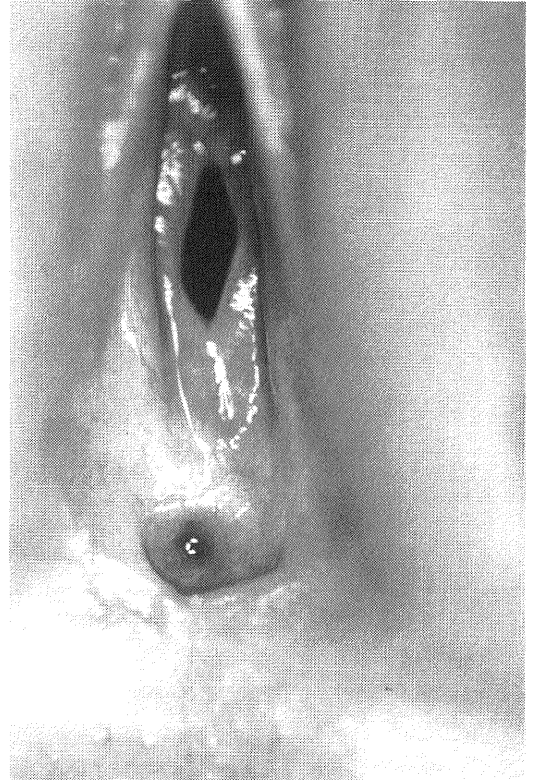


図1 膣前庭部にみられる瘻孔開口部

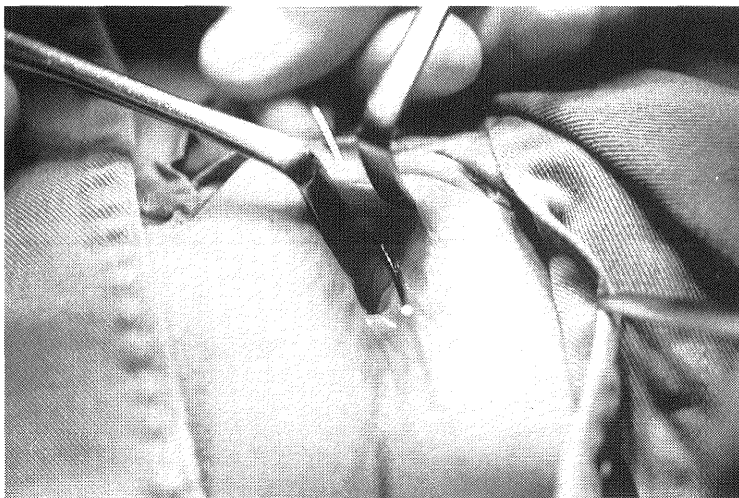


図2 瘻孔前庭側からゾンを挿入すると，肛門管の歯状線直下に通じている．

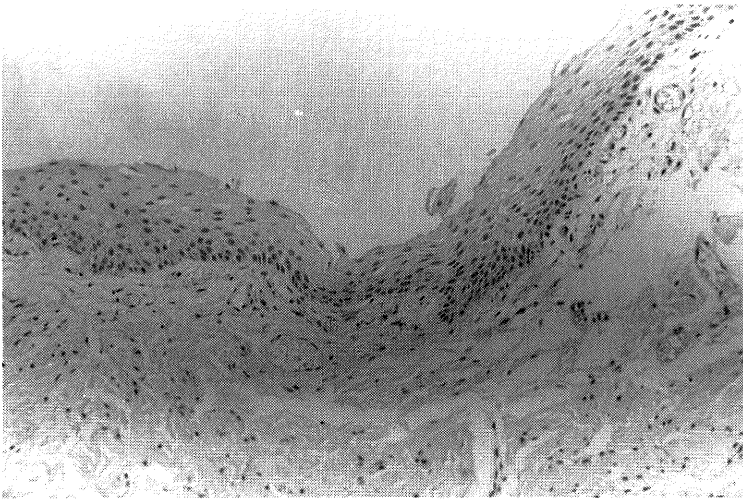


図 3 病理所見
瘻管内面は重層扁平上皮で覆われる。

III. 考 案

鎖肛を伴わない直腸膣前庭瘻は、直腸肛門奇形の国際分類¹⁵⁾で雑の部に、perineal canal として分類されている。すなわち、本症は鎖肛の病態発生と同じく、先天性形成異常であり、成因として発生途中で、会陰堤が欠け、その表面を生殖皺壁が被覆することが考えられている。この仮説に関して、1986年に Van der Putte¹⁶⁾は豚と人の胚胎研究より、同様のことを述べている。一方、本症がすべて先天性のものとする考え方¹⁷⁾⁻¹⁹⁾に対して、石原ら²⁰⁾は保存的療法で治癒できるので、必ずしも先天性と判断し難い症例があることを指摘している。

本症を先天性とする臨床的鑑別点として、古味ら²¹⁾は、1) 出生直後に瘻管が発見されること、2) 出生直後は気付かれず、肛門周囲に炎症の既往がないにもかかわらず、下痢などをおこして、偶然瘻孔が発見される場合、3) 瘻孔の位置は正中線(面)上にあり、少なくとも著しく左右に偏位していないこと、4) 直腸における瘻管の開口部が肛門弁、肛門洞、歯状線などいわゆる痔瘻の好発部位から離れて存在すること、5) 病理組織学的には上皮や粘膜筋板、固有筋層が認められることとしている。一方、石原ら²⁰⁾は先天性か後天性かの鑑別診断については組織所見からしか得られぬとの結論を得たとしており、鑑別に治療経過を加味し、低残渣の経腸栄養剤を用いて1年前後を経て、瘻孔の自然閉鎖が起こらな

ければ perineal canal も考慮するとしているものもある²²⁾。以上から、本症の患児は来院時には先天性か後天性かの区別は困難で、治療方針の決定に苦慮することが多いと考えられた。

本症発生時期に関して、われわれの調べ得た70例のうち¹⁷⁾²⁰⁾²³⁾⁻²⁶⁾、出生直後発症が7例、最も遅いのは生後5カ月の1例で、全体の約90%は生後2カ月以内であった。一方、後天的に本症を形成する可能性として、痔瘻があるが、乳幼児痔瘻では、男児が98%と圧倒的に多く¹⁰⁾、われわれの施設でも5年間で71例の乳児痔瘻中の5例のみが女児¹¹⁾で、荒川¹²⁾も乳児痔瘻414例中、女児は1例のみとしており、溝手ら¹³⁾も1歳未満の66例はすべて男児であったとしており、女児に痔瘻がみられることはまれと思われる。また、成人も含めての痔瘻の発生部位も、女性の前方痔瘻、中でも膣および膣前庭部への痔瘻はまれで、荒川²⁷⁾は女性痔瘻34例中1例の直腸膣瘻、1例の直腸会陰瘻がみられたとしており、高野ら²⁸⁾も、女性痔瘻422例中に46例の前方痔瘻がみられたが、直腸膣前庭瘻は1例も見られなかったとしている。いずれにしろ成人を含めての女性痔瘻症例は少なく、中でも前方痔瘻はまれで、さらに直腸膣前庭瘻は極めてまれと思われる。

さらに、われわれの経験した本症の3例を表1に示すが、発症早期に陰唇水腫や発赤の症状を呈したのも、摘出標本では、炎症所見はほとんどみられなかった。本症の炎症所見については、その成因を直腸壁より前下方

表 1

症例	発症 日齢	発症時 局所炎症	手術年齢	手術法	転 帰	病 理 所 見
1	45日	有	1歳8カ月	V-A 法	治癒	-----
2	40日	有	4歳	V-A 法	再発後 自然癒合	炎症反応殆どなし 重層扁平上皮
3	20日	有	3歳	V-A 法	治癒	炎症反応殆どなし 重層扁平上皮

V-A 法: vestibulo-anal pull-through 法

に先天性に迷入していた盲端の瘻孔が感染により、前庭部に開口することに起因するとの見解もあり¹⁵⁾、また、瘻管が細く、内容が停滞し、炎症を惹起することも考えられ、従来、炎症性ゆえに後天性としていた症例の中にも、かなり先天性の素因をもった症例があると考えられる。これらのことを考慮に入れると、われわれの経験した3例は古味らの先天性とする鑑別点をすべて満たしてはいないが、以下の理由により、先天性と考えられた。

- 1) 出生後2カ月以内の早期発症例であった。
- 2) 1年以上の保存療法でも瘻管は残存した。
- 3) 病理所見の瘻管内面は重層扁平上皮でおおわれていた。

治療方針に関しては、石原ら²⁰⁾は臨床像から先天性か後天性の区別が困難な本症の初期治療は保存的療法であり、6カ月間の経過観察で治癒せぬ症例に対し、手術的療法を考慮すべきと考えている。手術の時期は比較的早い時期の生後4～5カ月が適当と考えているものもあるが⁶⁾24)、われわれの施設においては、肛門と膈壁との距離、便の性状などの問題から、手術時期は2歳以後が適当と考えている。また、手術術式としては、vestibulo-anal pull-through¹⁴⁾による瘻孔技法が簡便でなおかつ満足すべき成績をあげられるものであると考えている。

IV. おわりに

先天性と考えられる、鎖肛を伴わない直腸膈前庭瘻3例の経験をもとに、本症の成因および治療方針について、若干の考察を加えて報告した。

参 考 文 献

- 1) 小出来一博, 平井慶徳, 橋本俱男, 清宮弘毅: 鎖肛を伴わない先天性直腸膈前庭瘻の1例. 手術, 20: 583~588, 1966.
- 2) 奥村信介, 内野純一, 上野冬生: 鎖肛を伴わない先天性直腸膈前庭瘻の1例. 外科, 31: 85~87, 1969.
- 3) 戸谷拓二, 田淵勝輔, 広瀬正明, 戸谷完二, 水口 卓: perineal canal (鎖肛を伴わない直腸膈前庭瘻): その成因と治療について. 手術. 27: 1163~1168, 1973.
- 4) 竹林 淳, 浅田健蔵, 十倉寛治, 片上善嗣, 林 宏輔, 吉条久友: 鎖肛を伴わない先天性直腸膈前庭瘻について. 小児外科内科, 5: 1165~1169, 1973.
- 5) 松田俊春, 佐藤雅英, 作田由美子, 渡辺岩雄: 鎖肛を伴わない直腸膈前庭瘻. 日小外会誌, 6: 528, 1971.
- 6) 崔 圭享, 内野純一, 葛西洋一: 鎖肛を伴わない直腸膈前庭瘻: 本邦集計例と発生頻度について. 日小外会誌, 11: 521~527, 1975.
- 7) 猪熊泰造, 石川政則, 丸山高司, 板野正隆, 横山 隆, 石井哲也: 先天性直腸膈前庭瘻(鎖肛門を伴わない)の1治験例. 広島医学, 29: 528~531, 1976.
- 8) 古味信彦, 池田直道, 安部文計: 鎖肛を伴わない直腸膈前庭瘻の考察: 類似病態と新病型分類の提唱. 日小外会誌, 12: 365~369, 1976.
- 9) 伊藤 寛, 佐野 博, 安藤重満, 戸田 孝, 室 博之: 鎖肛を伴わない直腸膈前庭瘻の3例. 外科, 38: 525~527, 1976.
- 10) 矢野博道: 乳児痔瘻. 小児外科, 23: 336~339, 1991.
- 11) 内山昌則, 岩 瀨 眞, 大沢義弘, 内藤真一, 内藤万砂文, 広川恵子, 八木 実, 飯沼泰史: 小児後天性肛門疾患の治療についての検討. 日小外会誌, 26: 1551~1156, 1990.
- 12) 荒川健二郎, 荒川二郎: 乳児痔瘻414例の検討. 日本大腸肛門病会誌, 31: 438~443, 1978.
- 13) 溝手博義, 矢野博道, 山内 胖, 福光高德: 乳児痔瘻の臨床的観察. 日本大腸肛門病会誌, 26: 77~78, 1973.
- 14) Chatterjee, S.K. and Talukder, B.C.: Double termination of the alimentary tract in female infants, J Pediatr Surg, 4: 237~243, 1969.
- 15) Stephens, F.D. and Smith, E.D.: Ano-rectal

- Malformations in children, Year Book Medical Publ. Chicago, p. 133~159, 1971.
- 16) **Van der Putte**: Normal and abnormal Development of the Anorectum, *J Pediatr Surg*, **21**: 434~440, 1986.
 - 17) **Tsuchida, Y., Saito, S., Honnna, T., Makino, S., Kaneko, M. and Hazama, H.**: Double Termination of the Alimentary Tract in Females — A Report of 12 Cases and a Literature Review —. *J Pediatr Surg*, **19**: 292~296, 1984.
 - 18) **Chatterjee, S.K.**: Double termination of the alimentary tract—A second look. *J Pediatr Surg*, **15**: 623~627, 1980.
 - 19) **White, J.J., Haller, J.A. Jr., Scott, J.R., Dorst, J.P. and Kramer, S.S.**: N-type anorectal malformation. *J Pediatr Surg*, **13**: 631~636, 1978.
 - 20) 石原通臣, 岩田光正, 岡部郁夫, 森田 健: 鎖肛を伴わない直腸隆前庭瘻14例の臨床的検討, *日小外会誌*, **21**: 970~975, 1985.
 - 21) 古味信彦: perineal canal. *小児外科*, **10**: 1335~1340, 1978.
 - 22) 中田幸之介: 後天性直腸肛門疾患. *新外科学大系*, 30D *小児外科IV*, 157~163, 中山書店, 東京, 1990.
 - 23) 古味信彦, 高柳和江, 宇高英憲, 大塩猛人: 鎖肛を伴わない直腸隆前庭瘻: その5症例を中心として. *臨床と研究*, **52**: 1100~1106, 1976.
 - 24) 里見 昭, 森田孝夫, 時松秀治, 石田 清: 鎖肛を伴わない直腸隆前庭瘻の1例. *臨外*, **35**: 1311~1315, 1980.
 - 25) 岩井直躬, 金田博文, 伝 俊秋, 柳原 潤, 高橋俊雄: perineal canal の1治験例. *小児外科*, **17**: 675~678, 1985.
 - 26) **Brem, H., Guttman, F.M., Laberge, J.M. and Doody, D.**: Congenital Anal Fistula With Normal Anus. *J Pediatr Surg*, **24**: 183~185, 1989.
 - 27) 荒川廣太郎: 女性の痔瘻. *日本大腸肛門病会誌*, **43**: 1063~1069, 1990.
 - 28) 高野正博, 藤好建史, 高木幸一, 河野通孝, 野村真一, 橋本正也, 辻 順行, 桂 禎紀, 濱田 映: 女性の前方痔瘻. *日本大腸肛門病会誌*, **43**: 165~171, 1990.

〔特別掲載〕 (平成5年7月27日受付)