

# 要望演題 一般演題

## 1

## 鎖肛根治術後に難治性の肛門狭窄を生じた1例

京都大学 小児外科

高田 斉人、小川 絵里、岡 晋弥、上本 伸二

症例は2歳の男児。在胎40週に自然経膈分娩にて出生。出生時体重2552g、Apgar score 8/9。出生直後に鎖肛、二分陰囊、尿道下裂を認め、その後の精査で食道閉鎖症 (GrossC)、肺動脈閉鎖症、心室中隔欠損症、動脈管開存症、右腎無形成も認めた。以上より本症例はVACTER (L) 連合の亜型と考えられた。出生当日に気管食道瘻結紮切離術・胃瘻造設術・人工肛門造設術 (横行結腸) を施行。生後11ヶ月過ぎに鎖肛根治術を腹腔鏡補助下に施行した。術後約1週間を経た時点で、直腸肛門吻合部の縫合不全が生じたが、保存的治療にて軽快した。後日、吻合部の詳細な観察を行なったところ、直腸肛門吻合部は全周性に離開し直腸粘膜と肛門皮膚の間隙に硬い癒痕組織が形成され、高度の肛門狭窄状態であることがわかった。保存的な拡張術を繰り返し行ってみたものの狭窄状態の改善はみられず、2歳7ヶ月時に肛門形成術を施行した。現在、外来にて経過観察中であるが、再狭窄は生じていない。

## 2

## 超音波ガイド下 pull through による肛門形成術後直腸位置異常に対し再手術を施行した高位型直腸肛門奇形の2例

大阪府立母子保健総合医療センター  
小児外科合田 太郎、窪田 昭男、川原 央好、  
米田 光宏、田附 裕子、谷 岳人、梅田 聡、  
平野 勝久

高位型直腸肛門奇形に対する腹腔鏡下肛門形成術は広く行われつつあるが、その有用性については議論の余地がある。今回超音波ガイド下直腸 pull through 後に位置異常のため再手術を要した2例を経験したので報告する。症例1：4歳男児。直腸膀胱瘻に対し、10か月時に腹会陰式肛門形成術施行し、超音波ガイド下に直腸を pull through した。長期に遷延する高度排便障害のためCTを行ったところ、直腸位置異常が認められた。PSARPにて再手術を行い、排便症状は改善した。症例2：1歳4か月男児。直腸尿道瘻に対し、8か月時に腹腔鏡下肛門形成術を施行。造影検査にてangulationが不良であったためMRI撮影し、直腸位置異常を認めた。人工肛門閉鎖前に再手術 (PSARP) を施行し良好な形態を確認した後に人工肛門を閉鎖した。腹腔鏡下肛門形成術においては、菲薄な骨盤底筋群の正中を正確に直腸を pull through することは必ずしも容易ではなく、拡張した直腸を tapering せずに pull through することで筋群を損傷する危険性もある。

### 3

## PSARP後の巨大直腸に対して tapering を行った一例

沖縄県立中部病院 小児外科

福里 吉充

【目的】 PSARP術後の巨大直腸症例に対して rectal tapering を行ったので、文献的考察を加えて報告する。

【症例】 39週、2700gにて出生。高位鎖肛に対して、6ヶ月時にPSARPを行った。4才頃より難治性便秘となり、肛門狭窄と巨大直腸を認めた。ブジーにて肛門狭窄は改善したが、巨大直腸は残存した。その後数回の全麻下摘便を要したため、8才時に tapering をおこなった。現在術後4年経過し、排便スコアは術前の5点から8点へと改善している。

【考察】 巨大直腸の成因として、先天性の hypomotility によるもの、術後肛門狭窄、排便管理不良など後天的なものが考えられている。便秘を伴う巨大直腸に対しては、緩下剤、浣腸による排便管理を徹底し、効果が乏しければ外科的治療を考慮する。

【結語】 難治性便秘を伴う巨大直腸に対しては、早期外科治療が望ましい。

### 4

## Anterior sagittal anorectoplasty 術後17年に術後狭窄に対し手術を要した直腸膈前庭瘻の1例

近畿大学 外科 小児外科部門

吉田 英樹、八木 誠、澤井 利夫、  
前川 昌平、木村 浩基

症例は17歳女性。病型は直腸膈前庭瘻（中間位）。生後3カ月に anterior sagittal anorectoplasty (以下ASARP) を一期的に施行。転居により他院でフォローされ、術後5年までは排便調節できていたが、術後10年ころから遺糞を認め、摘便のために繰り返し入院を要した。術後17年に精査加療目的で当科紹介。排便スコアは便意0、便秘2、失禁4、汚染2。直腸診では直腸下部後壁に輪状索状物を触れ、壁の伸展が不良であった。注腸造影では直腸の angulation は認めたが、直腸は嚢状に大きく拡張していた。MRIでは索状物を触れた部位に一致して直腸後壁に索状構造を認めた。術後狭窄が便秘の一因と考え、狭窄解除を目的に手術を施行した。術式は後方矢状切開アプローチとし、直腸後壁の線維性瘢痕を切開した。有効性については今後評価が必要だが、ASARP術後の稀な合併症と思われるので報告する。

## 5

## 低位鎖肛術後の長期合併症としての 高度便秘に対し、S状結腸切除・直 腸縫縮術を施行した一例

新潟大学大学院 小児外科

大山 俊之、窪田 正幸、奥山 直樹、  
小林 久美子、佐藤 佳奈子、仲谷 健吾、  
荒井 勇樹

症例は現在18歳の女性。在胎41週3日、正常経膣分娩、3014gで出生。第1生日に鎖肛で当院に搬送された。当科で低位鎖肛、anovestibular fistulaと診断し、浣腸とブジーで排便コントロール後、1歳時にPotts手術が施行された。その後5歳まで当科外来フォローされ、以後オフフォローとなった。15歳時にピコスルファートナトリウム液中断を契機に浣腸が効かなくなり、便秘となったため、約10年ぶりに当科受診した。各種下剤、浣腸にても排便のない高度便秘であった。8ヶ月に渡り鎮静下での摘便を繰り返したが排便コントロール不良で、16歳時にS状結腸切除、拡張直腸縫縮手術を施行した。6cmに拡張した直腸を縫縮し、S状結腸を28cm切除した。肛門括約筋切開術も予定したが、發育不良のため施行しなかった。術後、浣腸で排便が認められ、排便習慣に改善を得た。外科処置の必要な、高度便秘を長期的に合併した低位鎖肛例を経験し、文献的考察を加えて報告する。

## 6

## S状結腸有茎移植により膣形成を行っ た直腸総排泄腔瘻の1例

杏林大学医学部 小児外科<sup>1)</sup>、形成外科<sup>2)</sup>

渡邊 佳子<sup>1)</sup>、蕪澤 融司<sup>1)</sup>、浮山 越史<sup>1)</sup>、  
増古 賢太郎<sup>1)</sup>、望月 智弘<sup>1)</sup>、鮫島 由友<sup>1)</sup>、  
波利井 清紀<sup>2)</sup>

症例は22歳女性。出生時、直腸総排泄腔瘻と診断され乳児期に鎖肛に対して他院で仙骨会陰式直腸pull-through手術が行われ、その後9歳時に当院で膣形成術を行った。膣・尿道共通の総排泄腔部分は約3cmあり尿道として温存し、有茎のS状結腸で膣形成を行った。術後Hegarブジーを行いS状結腸で形成した代用膣は萎縮もなく十分な広さの内腔は維持されたが入口部に狭窄が残存した。22歳時に狭窄解除目的で形成外科にて皮弁移植狭窄解除術を施行した。術後膣入口部は十分に拡大した。自験例のようにS状結腸移植による膣形成術は萎縮も発生せず、成人に達した後も入口部の狭窄が残存しただけで狭窄の解除は可能であり非常に有用な方法であると思われる。

## 7

## 高位鎖肛術後長期にわたり人工肛門管理となっている男性3例の検討

慶應義塾大学医学部 小児外科

清水 隆弘、藤野 明浩、石濱 秀雄、  
藤村 匠、狩野 元宏、高里 文香、  
富田 紘史、下島 直樹、星野 健、黒田 達夫

高位鎖肛術後に合併症を繰り返すと肛門機能を失い、人工肛門からの離脱が困難となることが多く、現時点では解決しがたい問題である。2012年8月現在、当院外来通院中の直腸肛門奇形術後の男性のうち、長期間人工肛門管理となっている3例を呈示、検討したい。症例1は12歳。短結腸の高位鎖肛に対して生後6ヶ月に腹腔鏡補助下肛門形成術施行。術後縫合不全にて肛門閉鎖となり、1歳時に結腸全摘、回腸pull-throughを施行したが便保持困難にて、3歳時に回腸瘻造設し現在に至る。症例2は42歳。肛門形成術後であった7歳時に会陰部外傷を機に直腸尿道瘻を発症。その後成人期にわたり直腸尿道瘻閉鎖に複数回の手術を要し、現在は便保持機能不全のため人工肛門を閉鎖できずにいる。症例3は28歳。他院で乳児期に鎖肛根治術施行 (Rehbein法)、学童期に直腸周囲膿瘍で再手術 (10歳、14歳時) を受けた。2年前に直腸尿道瘻を再発し、根治術に先立ち下行結腸双孔式人工肛門を造設された。

## 8

当科における低位鎖肛の手術方法と  
晩期合併症の検討  
—再手術症例を中心に—

千葉大学大学院医学研究院 小児外科

中田 光政、菱木 知郎、齋藤 武、  
光永 哲也、照井 エレナ、小松 秀吾、  
原田 和明、吉田 英生

【目的】 当科では低位鎖肛に対して1993年までPotts法、Cut Back法を施行し、現在ではASARP法を施行している。これら手術法の治療成績と合併症について比較検討する。

【対象】 1970年から2011年12月までに施行したPotts法21例、Cut Back法57例、ASARP法43例の計121例。

【結果・考察】 術後合併症では創感染はPotts法が4例、Cut Back法が3例、ASARP法が8例と瘻孔を全周剥離する操作のある手術に多く認められた。7歳以降の排便機能評価ではどの術式も平均7点以上で良好であったが、粘膜脱・粘膜露出の症例はPotts法が7例、Cut Back法が17例、ASARP法が5例であり、再手術に至った症例はPotts法が1例、Cut Back法が3例、ASARP法が1例であり、再手術症例の問題点について検討する。

## 9

成人期における鎖肛術後の排便障害  
に対する管理治療法の検討

地方独立行政法人神奈川県立病院機構  
神奈川県立こども医療センター 外科

武 浩志、北河 徳彦、望月 響子、湊 雅嗣、  
白井 秀仁、大澤 絵都子、浅野 史雄

【目的】鎖肛術後の排便機能障害には、長期的な排便管理法や外科治療、さらに精神的サポートが必要である。成人期を迎えても問題を抱えている本症例の現況と治療法について報告する。

【対象・方法】20歳以上の鎖肛患児456例中、排便機能障害を抱え管理治療を行っている16例(男:女=9:7)を対象とし、これらの症例の管理治療法と治療成績を検討した。

【結果】主な排便管理法は、内服薬や浣腸等での内科的管理法が7例、人工肛門管理が6例、洗腸が3例(順行性2、逆行性1)であった。成人期の手術例は、便失禁のための人工肛門造設例、低位鎖肛術後で縫合不全を合併し管理困難な便失禁のため22歳時に癒痕切除と恥骨直腸筋縫縮術を施行した症例が各1例あり、治療によりQOLは改善した。

【結語】鎖肛術後の排便機能障害は成人期においても継続する長期的問題であり、各個人の社会生活を考慮し積極的に管理治療することが重要である。

## 10

## 重複肛門の5例

昭和大学横浜市北部病院こどもセンター  
小児外科<sup>1)</sup>  
昭和大学 小児外科<sup>2)</sup>

渡井 有<sup>1)</sup>、鈴木 孝明<sup>1)</sup>、大橋 祐介<sup>1)</sup>、  
田山 愛<sup>1)</sup>、中神 智和<sup>1)</sup>、梅田 陽<sup>1)</sup>、  
土岐 彰<sup>2)</sup>

自験例5例はすべて女児で診断時年齢は1ヶ月-2才であった。重複肛門の形態はすべて管状で盲端に終わっており正常直腸との交通は認めなかった。発見動機は全例おむつ交換時に母親に気づかれていた。瘻孔の長さは13-22mmでいずれも正常肛門の背側6時方向に開放しており3-5mm大の瘻孔として気づかれていた。2例で術前に便秘を認めたが術後改善している。術式はいずれも肛門挙筋は切除せずposterior sagittal anorectoplastyに準じて完全切除しており合併症は創し開の1例のみであった。いずれも病理組織にて重複肛門と確認された。重複腸管のなかでは最も頻度の低い重複肛門だが、近年その報告例は近年増加し1施設から複数の報告も見られるようになった。内外の報告例は100例に満たないが見逃されているだけで多数の患児が存在する可能性が高く、乳幼児の定時健診には肛門部・外陰部の十分な観察が必要である。今回われわれが経験した5例の重複肛門管を内外の文献的考察を加えて報告する。

## 11

### 女児乳児痔瘻の3例

日本大学医学部 小児外科

大橋 研介、池田 太郎、後藤 俊平、  
蘇我 晶子、川島 弘之、細田 利史、  
井上 幹也、杉藤 公信、越永 従道

女児乳児痔瘻(以下本症)は稀であり診断・治療に難渋する事が多い。今回我々は本症の3例を経験したので病理所見を中心に報告する。

【症例1】生後2ヵ月に発症し膣前庭正中部に排便を認め瘻管を形成した。保存療法が走行せず8ヵ月に瘻管摘出を行った。病理所見では瘻管に固有筋層は伴わず、内腔は円柱上皮および重層扁平上皮で被覆されていた。

【症例2】生後1ヵ月で発症し両側大陰唇から排便を認めたが徐々に膣前庭正中に瘻管を形成した。1才時に瘻管摘出を行った。病理所見では瘻管に軽度の炎症細胞浸潤を認め内腔は重層扁平上皮で被覆され固有筋層も認めた。

【症例3】生後1ヵ月で発症し左大陰唇から排便を認めた。1才6ヵ月で瘻管摘出を行った。病理所見では瘻管は膠原線維性組織で構成され、内腔は扁平上皮で被覆されていた。

3例とも臨床経過は典型的な乳児痔瘻であったが病理所見はvarietyに富み本症の病因および病態の複雑性が示唆された。

## 12

### 肛門狭窄を合併した前方肛門の1例

国立成育医療研究センター 外科

高橋 正貴、田中 秀明、渡邊 稔彦、  
佐藤 かおり、大野 通暢、山田 和歌、  
山田 耕嗣、淵本 康史、金森 豊

症例は9ヶ月の男児。周産期に異常なく、既往歴なし。離乳食摂取開始後から便秘が出現したため浣腸と肛門刺激で排便コントロールを行っていたが、他院を受診した際に鎖肛を疑われ当院へ紹介受診した。瘻孔は前方に偏移しており、直腸まで瘻孔の長さは約0.5cm程であった。瘻孔は狭く、排便困難であったために連日ブジーと洗腸を行った。肛門皮膚瘻の術前診断で根治術を施行した。術中によく観察したところ、瘻孔部に歯状線を認め、外肛門括約筋は全周を取り巻いていたために、肛門狭窄を伴う前方肛門と診断し、ASARPを施行した。術後4ヶ月経過するがブジーと浣腸にて排便コントロール良好である。前方肛門の疾患概念については、その存在自体に議論のあるところで、直腸肛門奇形の病型分類不能型に属する。肛門狭窄を伴い、解剖学的に前方肛門を示唆する1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

## 13

## 低位鎖肛に合併したHirschsprung病の一例

秋田大学 小児外科

渡部 亮、森井 真也子、蛇口 琢、吉野 裕顕

1歳4ヶ月の男児。中間位鎖肛の診断で日齢1に人工肛門増設術、生後7ヶ月に鎖肛根治術を施行した。術中所見では低位鎖肛であった。11ヶ月に人工肛門を閉鎖。術後2週に発熱・吐血・下血・胆汁性嘔吐を発症。その後も再燃を繰り返した。下部消化管内視鏡では器質的通過障害はなく、生検で粘膜への好酸球浸潤を認めた。好酸球性腸炎の診断でステロイド治療を行い症状は改善したが、便秘症が続き洗腸管理を必要とした。注腸造影でS状結腸にcaliber changeを認め、直腸肛門内圧反射陰性であったが、直腸粘膜生検ではAchE活性陽性神経線維の増生は認めなかった。1歳4ヶ月に開腹結腸全層生検術を施行。神経節細胞を認めずlong segment typeのHirschsprung病(H病)と診断。経肛門的Soave法を施行した。鎖肛にH病の合併は稀で、H病の診断が困難なことが多い。文献的考察を加えて報告する。

## 14

## 会陰前方アプローチで瘻孔処理を行った肛門直腸奇形の3例

金沢医科大学 小児外科

安井 良僚、河野 美幸、桑原 強、高橋 貞佳、押切 貴博

直腸(肛門)盲端がI線を超える尿道瘻を伴う肛門直腸奇形に対し、外肛門括約筋の前方から瘻孔を処理した3例を報告する。症例はすべて男児で、日齢1に横行結腸に人工肛門を造設した。症例1：盲端はI線を越え、瘻孔は前部尿道に開口し肛門尿道瘻と考えられた。会陰部および陰茎に皮膚瘻は認めなかった。合併奇形として脊椎奇形、尿道下裂を認めた。症例2：双胎第二子。盲端はI線を越え、瘻孔は前部尿道および陰囊の縫線部の皮膚に開口した肛門尿道皮膚瘻と考えられた。合併奇形は認めなかった。症例3：盲端はI線を越え、瘻孔は球部尿道に開口していた。会陰部および陰茎に皮膚瘻は認めなかった。合併奇形として食道閉鎖、椎体異常、左嚢胞腎、右側大動脈を認めた。いずれの症例も6ヵ月前後で外括約筋の前方から瘻孔を処理し、これをpull throughして肛門形成した。全症例において術後合併症は認めず、症例1、2は人工肛門を閉鎖しており、肛門機能は良好である。

## 15

### 乳児期に診断された低位鎖肛の検討

京都府立医科大学 小児外科

石川 翔一、青井 重善、樋口 恒司、  
文野 誠久、古川 泰三、木村 修、田尻 達郎

【目的】直腸肛門奇形の中には、新生児期に小児外科医に紹介されず、乳幼児期になってから便秘や肛門異常を契機として診断に至る例がある。当科で経験したこれらの“新生児期見落とし例”について報告する。

【症例】2009年から2012年の間に経験した新生児期に見落とされた例は6例であった。性別は女児5例、男児1例で、主訴は便秘が4例、肛門外観異常3例、血便が1例であった。いずれも低位型、肛門皮膚瘻であり、診断時期は中央値14.5ヶ月(3~67ヶ月)であった。収縮中心-瘻孔間距離は中央値4mm(2~15mm)であった。治療として、cut-back肛門形成術を3例に、後矢状直腸肛門形成術を2例に行い、1例は排便機能が良好であり両親の希望で無治療とした。手術加療を行った5例のうち3例(60%)が術後排便コントロールを要している。

【考察】新生児期より難治性便秘や肛門形態異常を認める例ではできるだけ早期に小児外科医にコンサルトできるよう、産科、小児科と密な関係を構築することが重要である。

## 16

### 直腸膀胱瘻が疑われる総排泄腔奇形の一例

自治医科大学 小児外科<sup>1)</sup>、小児泌尿器科<sup>2)</sup>

小野 滋<sup>1)</sup>、辻 由貴<sup>1)</sup>、馬場 勝尚<sup>1)</sup>、  
薄井 佳子<sup>1)</sup>、柳澤 智彦<sup>1)</sup>、前田 貢作<sup>1)</sup>、  
中村 繁<sup>2)</sup>、中井 秀郎<sup>2)</sup>

直腸盲端が総排泄腔ではなく膀胱に開口していると考えられる総排泄腔奇形の一例を経験したので報告する。

症例は5ヶ月女児。在胎38週5日、2744g、Ap 8/9にて出生。会陰部に一孔しか認められないため当院NICUに搬送。総排泄腔奇形と診断し、生後2日に横行結腸に人工肛門を造設。先天性心疾患(ファロー四徴症)の合併に対し、生後36日に姑息手術を施行。全身麻酔時に挿管困難を認め、硬性気管支鏡検査にて先天性声門下腔狭窄症と診断し、気管切開術を施行。さらに、H型気管食道瘻を認め、生後85日に頸部アプローチによる気管食道瘻切離術を施行した。

総排泄腔奇形に対しては三管造影にて、直腸が膀胱後壁に開口していることが判明したが、膈および子宮は造影されなかった。臨床的に直腸への尿逆流が著しく、尿路感染をくり返していたこと、膀胱機能が保たれていることから、早期の尿路感染の防止が膀胱機能のrescueにつながると考え、生後147日に根治手術に先立ち直腸膀胱瘻離断術を施行した。この時の開腹時所見にて両側正常卵巢および双角子宮を確認した。術後尿路感染は認めず、現在肛門および心臓の根治術待機中である。

## 17

直腸尿道瘻を伴った総排泄腔遺残の  
1例

東北大学 小児外科

西 功太郎、仁尾 正記、和田 基、  
佐々木 英之、佐藤 智行、田中 拡、  
中村 恵美、岡村 敦、大久保 龍司

直腸尿道瘻を伴った総排泄腔遺残の1例を経験したので報告する。症例は39週2日、2626gで出生した女児。生後肛門がないことに気づかれ当科紹介となった。会陰は1穴で、当初の造影で総排泄腔遺残と診断し、日齢1に横行結腸人工肛門造設術を施行した。術後の3管造影と膀胱鏡およびMRI所見等より、重複子宮・膣中隔を認め、直腸瘻が子宮膣の中隔内を貫通し、膀胱頸部直下の尿道に開孔し、さらにその会陰側で膣と尿道が合流して会陰にいたることを確認した。生後10ヶ月時に腹腔鏡下に手術を施行した。臍部および両側腹部の3個の5mmポートを用い、直腸瘻を子宮貫通部まで剥離して切離、断端を二重結紮で処理した。次いで電気刺激により新肛門の位置を決定するとともに肛門挙筋の分布を確認して直腸肛門形成術を施行した。1歳時に人工肛門を閉鎖し排便管理中である。現在なお尿生殖洞の状態で、将来タイミングをみて膣形成術を行う予定である。

## 18

Cloacal dysgenesis sequence  
(CDS)の長期生存例茨城県立こども病院 小児外科<sup>1)</sup>  
筑波大学臨床医学系 小児外科<sup>2)</sup>  
武庫川女子大学 食物栄養学科<sup>3)</sup>  
筑波大学臨床医学系 産婦人科<sup>4)</sup>矢内 俊裕<sup>1)</sup>、川上 肇<sup>1)</sup>、藤澤 空彦<sup>1)</sup>、  
松岡 亜記<sup>1)</sup>、松田 諭<sup>1)</sup>、平井 みさ子<sup>1)</sup>、  
連 利博<sup>1)</sup>、瓜田 泰久<sup>2)</sup>、雨海 照祥<sup>3)</sup>、  
濱田 洋実<sup>4)</sup>

会陰部に尿道・膣・肛門の開口部がないことを特徴とする極めて予後不良の稀な先天異常であるCDSの長期生存例を経験したので報告する。

【症例】13歳、女児。胎児USで重度の尿道閉塞による巨大膀胱が認められたため在胎17週と21週に膀胱羊水腔シャント術が施行され、在胎38週に出生となった。会陰部には尿道・膣・肛門の開口部がみられず、チューブ膀胱瘻造設術・人工肛門造設術を施行され、術後の精査で直腸膀胱瘻・左重複尿管・両膀胱尿管逆流症(VUR)が認められた。4歳時に直腸肛門形成術・両尿管膀胱新吻合術・導尿路作成術(左盲端尿管を利用)を施行された。当院では思春期前の11歳時に回腸利用造膣術・禁制型導尿路作成術(Monti法)を施行した。術後1年の現在、月経血のドレナージは良好である。

【結語】CDSで1歳以降生存の報告例は5例のみであり、自験例では胎児治療によって腎機能障害が予防され、肺低形成や重度の羊水過少を防止できた。

## 19

## 二ヶ所の外肛門括約筋収縮点を有する低位鎖肛患児の直腸肛門機能解析

石川県立中央病院  
いしかわ総合母子医療センター 小児外科

下竹 孝志、石川 暢己、廣谷 太一

症例は在胎40週2日、体重3,000 gにて出生した女児。生直後より肛門の偏位と会陰形成異常を指摘され、排便障害を伴ったため当科紹介となった。初診時、全身状態は良好であるものの軽度の黄疸と腹部膨満が認められた。会陰部所見では、外尿道口及び膣口の形状は正常であるものの後交連の形成はなく、膣前庭部の粘膜様上皮が後方に広がり、二ヶ所の括約筋収縮点を有する狭小化した肛門に連続していた。以上の所見より、会陰溝 (perineal groove) を伴う肛門狭窄症と診断し、直腸肛門機能検索及び肛門拡張術を施行した。同軸多指向性multichannel-manometerを用いた内圧測定では、直腸肛門反射は陽性であるものの、静止圧曲線において内圧の偏在性が確認された。また、神経筋刺激装置を用いた外肛門括約筋の分布解析では、便排泄の認められる肛門部 (主) 及び余剰収縮点 (副) 間の肛門括約筋束の走行分布に島状の癒合・欠損領域の存在することが確認された。

## 20

## 無瘻孔型直腸肛門奇形の病型診断に対する超音波検査の有用性

茨城県立こども病院 小児外科

松田 諭、連 利博、矢内 俊裕、  
平井 みさ子、川上 肇、松岡 亜記、  
藤澤 空彦

無瘻孔型の直腸肛門奇形は病型診断に難渋し、低位鎖肛に対し無用な人工肛門が造設されることも少なくない。invertographyでは直腸盲端レベルを正しく評価できない可能性がある。今回、超音波検査がレベル診断に有用であった症例を経験したので報告する。

【症例1】2770g, 37w4dにて出生。ダウン様顔貌および無瘻孔型鎖肛を認めた。invertographyにて高位鎖肛と判断され、第1生日にS状結腸人工肛門造設術を施行。その後のストーマ造影で低位鎖肛と診断され、第14生日に会陰式肛門形成術を施行した。

【症例2】3110g, 38w5dにて出生。ダウン様顔貌、無瘻孔型鎖肛、AVSDを認めた。invertographyでは直腸盲端はI line上で肛門縁からの距離は約15mmであったが、超音波検査では肛門縁からの距離が9.0~10.1mmであった。第1生日に会陰式肛門形成術を施行。肛門縁から約10mmの位置に直腸盲端を容易に同定した。

## 21

## 尾部退行症候群の直腸尿道瘻に対し、 下肢機能の改善を待って根治術を 行った1例

神奈川県立こども医療センター 外科

北河 徳彦、新開 真人、武 浩志、  
望月 響子、湊 雅嗣、大澤 絵都子、  
浅野 史雄、白井 秀仁

尾部退行症候群 (Caudal regression syndrome, CRS) は尾部脊椎の低形成と、それに伴う下肢低形成、消化器・泌尿生殖器の異常を含む症候群である。鎖肛を伴う場合、根治術は下肢機能を考慮する必要があるが報告は少ない。今回、下肢機能の獲得を待ち、鎖肛根治術を施行した症例を経験したので報告する。

【症例】男児。出生前の異常は指摘されず、39週4日、2794gで出生。仙尾骨の部分欠損、腰仙椎移行部での脊髓切断、下肢変形、中間位鎖肛、左腎欠損、停留精巣を認めCRSと診断した。日齢1でS状結腸人工肛門を造設。当初は下肢機能が悪く坐位もとれないため長期の人工肛門管理を想定した。しかし距骨摘出、リハビリ等で徐々に下肢機能は改善、3歳時には坐位で自然排尿できるまでになった。このことから鎖肛根治術は可能と判断し、仙骨会陰式根治術を施行した。術後は浣腸を使用し、トイレでの排便が可能となった。

## 22

## 低位鎖肛 (Anocutaneous fistula) に仙骨無形成が合併した一例

日本大学医学部 小児外科

小野 賀功、井上 幹也、蘇我 晶子、  
石岡 茂樹、川島 弘之、金田 英秀、  
大橋 研介、杉藤 公信、池田 太郎、  
越永 従道

【はじめに】VACTER症候群やCurrarino's triadのように消化管閉鎖と脊椎病変を合併する症例はよく知られている。しかし仙骨無形成と直腸肛門奇形の合併症例は稀であり報告する。

【症例】現在4歳の女兒。在胎37週0日、3,555gで出生、出生後鎖肛 (Anocutaneous fistula) に気づかれた。他に内反足、脊椎形成異常を認めた。脊椎MRIにて仙骨無形成とL5低形成の診断となった。鎖肛に対して生後7ヶ月でlimited PSARPを施行し、術後41ヶ月の現在、浣腸と下剤で排便コントロール良好である。内反足に対して生後18ヶ月に手術治療を行い、生後27ヶ月で歩行可能、現在も歩行可能である。現在まで仙骨無形成性に対しての積極的加療はおこなってはいないが今後成長に伴い経肛門的排便、自然排尿、歩行に障害が発生する可能性が考えられ経過観察を要する状態である。

## 23

## クラリーノ症候群4例の直腸肛門奇形についての検討

千葉県こども病院 小児外科

松浦 玄、岩井 潤、花田 学、四本 克己、  
東本 恭幸

クラリーノ症候群の直腸肛門奇形は表現型が多様で、詳細な検索とそれに合わせた管理、手術が必要となる。

【症例1】日齢1男児。直腸体温計挿入不可で紹介。直腸狭窄で経肛門チューブ管理。4か月時に狭窄部切除直腸肛門吻合と腫瘍摘出。病理は過誤腫。

【症例2】日齢5女児。腹部膨満で紹介。肛門前庭瘻相当。仙骨前髄膜瘤に向かう瘻管あり。5か月時に髄膜瘤閉鎖と係留解除術、8か月時にPSARPと腫瘍摘出。病理は過誤腫と脂肪腫の混在。

【症例3】9か月女児。直腸指診不能で紹介。肛門皮膚瘻相当、別に盲端に終わる肛門様の陥凹を認めた。1歳2か月時にPSARPと腫瘍摘出。病理は過誤腫。

【症例4(不全型)】日齢0男児。鎖肛で紹介。中間位(直腸皮膚瘻)相当で瘻孔は陰囊基部に開口し仙尾部の嚢胞とも連続していた。人工肛門管理とした。嚢胞のMRSA感染でドレナージ洗浄後、3か月時に嚢胞摘出。病理は成熟奇形腫。9か月時にPSARPと遺残腫瘍摘出。

全例術後排便機能は概ね良好である。

## 24

## 高位鎖肛に神経因性膀胱による2次性膀胱尿管逆流を合併したVACTER associationの1治療例

埼玉県立小児医療センター  
小児外科<sup>1)</sup>、小児泌尿器科<sup>2)</sup>益子 貴行<sup>1)</sup>、内田 広夫<sup>1)</sup>、川嶋 寛<sup>1)</sup>、  
田中 裕次郎<sup>1)</sup>、出家 亨一<sup>1)</sup>、多田 実<sup>2)</sup>、  
小林 堅一郎<sup>2)</sup>、古屋 武史<sup>2)</sup>、佐藤 重矢<sup>2)</sup>

症例は6か月男児。日齢1に高位鎖肛と食道閉鎖に対し胸腔鏡下食道吻合術、人工肛門造設術を施行。術後、食道の縫合不全は保存的に軽快したが、食道裂孔ヘルニア、pH index 32.0%と重症GERDがみられ、月齢4に腹腔鏡下噴門形成術施行。一方、月齢2に尿路感染症(UTI)を発症し、DMSAシンチでuptakeに左右差はないものの軽度瘢痕がみられ、抗生剤予防内服を開始した。VCUGで両側膀胱尿管逆流(VUR)を認め、膀胱形態は正常であるが、尿水力学検査で低活動膀胱と診断した。MRIでは脊髓円錐がみられず終末高位でありさらにUtricleがみられた。神経因性膀胱を伴うVURに対し、間欠導尿を開始し、月齢6に尿管膀胱新吻合と腹腔鏡補助下高位鎖肛根治術を同時に施行した。泌尿器病変合併鎖肛症例の一治療例を提示し、文献的に考察する。

## 25

## 直腸肛門奇形に合併した膀胱尿管逆流症症例の検討

埼玉県立小児医療センター  
泌尿器科<sup>1)</sup>、外科<sup>2)</sup>

小林 堅一郎<sup>1)</sup>、多田 実<sup>1)</sup>、古屋 武史<sup>1)</sup>、  
佐藤 亜耶<sup>1)</sup>、内田 広夫<sup>2)</sup>、益子 貴行<sup>2)</sup>、  
出家 亨一<sup>2)</sup>、田中 裕次郎<sup>2)</sup>、川嶋 寛<sup>2)</sup>

【目的】直腸肛門奇形に合併した膀胱尿管逆流症症例の治療を検討する。

【対象と検討】直腸肛門奇形に合併した膀胱尿管逆流症 9例（鎖肛 7例、総排泄腔遺残 2例）の背景、治療、経過を検討した。

【結果】合併尿路疾患は後部尿道弁 2例、腎回転異常 1例、片側腎無形成 2例で、全例尿路感染症の既往と腎病変を認めた。施行治療は尿管膀胱新吻合術 6例、経尿道的弁切開術 2例、無カテーテル式膀胱ろう造設術 1例で、尿管膀胱新吻合術は直腸肛門奇形根治術時同時施行 2例、術後施行 2例であった。感染管理困難な尿道弁合併例 1例と腎回転異常と片側無形成腎の合併例 1例は直腸肛門奇形根治術施行前に経尿道的弁切開術と膀胱ろう造設術を施行していた。尿路感染再燃、腎病変進行例は認めていない。

【結語】直腸肛門奇形に合併した膀胱尿管逆流症の管理は良好であった。治療法、時期は尿路病変及び腎病変合併を検索し、症例により考慮する必要がある。

## 26

## 膀胱外反症に合併した直腸肛門奇形の一例

筑波大学 医学医療系 小児外科

藤代 準、高安 肇、新開 統子、瓜田 泰久、  
五藤 周、神保 教広、坂元 直哉、  
佐々木 理人、増本 幸二

症例は現在8ヶ月の男児。胎児エコー・MRIにて膀胱外反症が指摘され、直腸の拡張から鎖肛が疑われていた。38週3日、2867gにて予定帝王切開で出生した。膀胱外反症と鎖肛を認め、外反した尿道先端に胎便が透見された。倒立撮影ではPC線、I線の評価は困難であったが、直腸下端は会陰部皮膚に近かったことから低位鎖肛（肛門皮膚瘻）と診断した。単純CTでは仙骨奇形を認めた。日齢1に膀胱閉鎖術、人工肛門造設術を施行した。後日施行した直腸瘻孔造影では、直腸下端は陰嚢基部近傍にあり瘻孔は陰嚢皮膚から離れた深部を通り尿道先端に達していた。7ヶ月時にASARPを施行した。直腸下端を切開し瘻孔にアトムチューブを挿入、これをガイドに会陰部の創から瘻孔を尿道先端まで剝離、切除した。現在肛門ブジーを施行中であり、今後人工肛門閉鎖術を計画している。膀胱外反症に合併した稀な直腸肛門奇形の一例を経験したので報告する。