



Fusion of intussusceptum and intussusciens in intrauterine intussusception : A rare type of intestinal atresia

今井, 幸弘

(Degree)

博士 (医学)

(Date of Degree)

2000-03-15

(Resource Type)

doctoral thesis

(Report Number)

乙2398

(URL)

<https://hdl.handle.net/20.500.14094/D2002398>

※ 当コンテンツは神戸大学の学術成果です。無断複製・不正使用等を禁じます。著作権法で認められている範囲内で、適切にご利用ください。



氏名・(本籍)	今井幸弘	(兵庫県)
博士の専攻 分野の名称	博士(医学)	
学位記番号	博ろ第1723号	
学位授与の要件	学位規則第4条第2項該当	
学位授与の日付	平成12年3月15日	
学位論文題目	Fusion of intussusceptum and intussusciens in intrauterine intussusception: A rare type of intestinal atresia (母胎内腸重積における内筒一外筒融合: 腸閉鎖症の特殊型)	

審査委員	主査 教授 伊東 宏
	教授 前田 盛 教授 中村 肇

論文内容の要旨

はじめに:先天性腸閉鎖は比較的まれな奇形であり、出生1500例あたり1例とされている。腸閉鎖は通常5つの型に分類され、I型は膜様閉鎖、II型は閉鎖した盲端同志が索状物で、あるいは直接つながっているもので、III型は閉鎖した両端が離れてその間の腸間膜が欠損しているもので、IV型は多発性の閉鎖をさす。III型のうち、閉鎖端がねじれていらないものをIIIa型、閉鎖端が捩じれているものをIIIb型と呼ぶ。腸閉鎖にはさまざまな原因があると考えられており、膜様閉鎖のI型は腸管発生早期において一時的に腔を埋めていた上皮細胞に腔が再疎通する過程の障害と考えられている。また、両端が閉鎖したII型、III型に関しては母胎内で起こった炎症や血管障害によるものと考えられており腸重積、腸のループのねじれ、臍輪による絞扼、梗塞などがその中に含まれる。これらのうち、二羊膜一絨毛膜性の双胎例に関しては梗塞が関与している可能性が高い。また、切り離された片方の盲端が剥ぎかけのリンゴの皮の様にねじれたもの(IIIb型)やソーセージの様に連なる多発性の閉塞に関しては腸のループのねじれによるものと考えられる。小腸閉鎖の原因に占める子宮内腸重積はかなり稀なものとされてきた。Kellyら(文献15)が閉鎖に続いて重積が起こる可能性を示唆して以来、閉鎖と重積が合併した症例に関する文献的報告は少ない。1955年にEvansが腸閉鎖のうち9/1500と報告したのは(文献1)それまでに文献的に報告されていた小腸、大腸閉鎖にかんするreviewに基づくものであり、小腸閉鎖における腸重積に関する認識の低かった時代のもので、今日我々が遭遇する子宮内小腸重積の症例はこれよりはるかに多い。

子宮内小腸重積には1984年にHayashidaらが報告した。内筒が閉鎖端から離れた位置に認められるものがある。我々は内筒が閉鎖端から離れていた2例の所見を詳細に検討し、その他の腸閉鎖症例の所見と比較し、その成因を追究した。

材料と方法:1986年から1997年の間に兵庫県立こども病院で外科的治療を受けた空腸、回腸閉鎖42例について手術所見、病理所見を検討し、そのうち閉鎖部ないしその近くに重積部が認められた11例(表1)についてさらに詳細に検討した。

結果：11例のうち7例が男児で、4例が女児で、2例が空腸、9例が回腸で、このうち3例では閉鎖部の両端がつながっており（Ⅱ型）、8例では両端が離れて、間に腸間膜欠損部を認め、盲端のねじれを認めなかった（Ⅲa型）（表1）。11例は全て生後2日以内に発症しており、5例で胎便性腹膜炎を、1例で急性化膿性腹膜炎を合併していた。ポリープ状の内筒は11例とも組織学的に確認できた。最内筒は3例で完全に消失しており、6例で先進先端部のみに残存しており、他の2例では標本から最内筒の有無が確認できなかった。石灰化は9例で内筒の内部に認められた。これらの内、盲端から離れた場所にポリープ状の内筒を認めた2例（症例1、2）と、内筒と外筒に縦走潰瘍が認められた1例（症例3）について詳述する。

症例1；離れたポリープ：生後3日男児。34週2750gで出生し、主訴は腹部膨満。胎便性腹膜炎、先天性腸閉鎖の診断で開腹術施行。トライツ韁帯から60cm肛門側に軸捻転を認め、捻転を解除すると分離した二つの盲端が認められ、間にU字形の腸間膜欠損があり、口側の拡張が認められた。閉塞部を含む両側の腸管を切除し、端端吻合を行い、術後経過は良好であった。

病理所見：口側の腸管は径2cmで、腸間膜は盲端の先端に付着していた。肛門側の腸管は径1.2cmで、腸間膜は盲端の側方に終わっていた。肛門側の腸管を切開すると（図1A）、長さ2.5cm、太さ4mmの芋虫のような隆起がみられ、この隆起の肛門側の端から、長さ1cm、太さ4mmの指のようなポリープが口側に向かって伸びしており、先端部はnecroticであった。組織学的には隆起部の粘膜は腸管の残りの部分と連続しており（図1B、C）、筋層は逆U字形でその端が主な部分の筋層と線維性瘢痕で癒着しており、U字に囲まれて太い動脈を含む脂肪織が部分的に漿膜に包まれて存在し、腸間膜はそれとは別に存在した。ポリープは裏返しの粘膜筋層とそのまん中に入り込んだ脂肪織からなり、壊死した先端部では先端から折り返して入り込む粘膜を認めた（図1D）。

症例2；離れたポリープと線状潰瘍：生後5日女児。生後11時間後から反復性の胆汁性嘔吐を來した。閉鎖部の両端は互いに癒着し、その2cm肛門側に重積を認めた。重積を解除すると、閉鎖部の肛門側の腸管内に指状のポリープが触知された。

病理所見：閉鎖部の両端は互いに癒着し、口側の腸管が肛門側の腸管を腸間膜から押し上げるように潜り込んでおり、筋層間には連続を認めなかった。肛門側の腸管を切開すると（図2A）、盲端の4cm肛門側から5x0.8x0.7cmのポリープが口側を向いて伸びており、ポリープの起始部と盲端を結ぶ太さ4mmの芋虫のような隆起がみられた。組織学的には隆起部は腸間膜反対側に位置し、それぞれ二層からなる二重の筋層を持ち、それらの間に腸間膜様の構造が認められ、内側の筋層は線維組織で外側の筋層に癒着していた（図2B）。内部の腸間膜組織に小石灰化物とそれに接して平滑筋束を認めた（図2C）。ポリープは裏返しの粘膜筋層とそのまん中に入り込んだ脂肪織からなり、基部には縦走する線状潰瘍を認めた（図2D）。

症例3；線状潰瘍：生後2日男児。生直後から反復性の胆汁性嘔吐と腹部膨満を呈した。離れた盲端とその間のV字形の腸間膜欠損が認められた。

病理所見：肛門側盲端からの腸管内に長さ5cm、太さ8mmの指のようなポリープが伸びしており、組織学的にポリープは裏返しの粘膜筋層とそのまん中に入り込んだ脂肪織と斑点状の石灰化物からなり、全長に渡って縦走する線状潰瘍を認め、部分的に潰瘍が裂けて腸間膜組織が小腸腔内にはみだしていた（図3）。また、外側の腸管には内側の裏返し腸管の潰瘍に向かい合う形で線状潰瘍を認め、潰瘍は腸間膜側から反対側へと横切って伸びていた。

考察：腸閉鎖に合併する腸重積は腸閉鎖の結果であるという意見もあるが、その根拠として引用され

ている Kelly らの論文（文献15）で述べられているのは出生後に壊死を起こした腸管が先進部となって腸重積が起こったと臨床所見から推測される一症例に関する報告で、腸閉鎖に合併した腸重積を形態学的に追究して、閉鎖が先行して閉鎖部が重積したと考えられる根拠を示した文献を見いだせなかった。実験的にラット胎児の腸間膜血管を結紮するとその部分の腸管組織が消失する（文献3）。実際、重積のない腸閉鎖では、我々の31例でもその他の文献でも、形の残った壊死腸管が閉鎖端の遠位部から連続的に残存しているものは見いだせなかった。図4右に示すように、壊死腸管が盲端に連続していない閉鎖遠位端が重積すると、先端部に最内筒の全く無い重積となるはずであるが、我々の11例のうち少なくとも6例では先端部に最内筒を認め、少なくともこの6例では重積が閉鎖に先行した（図4左）と考えられる。重積の原因について、粘稠な胎便が先端部となる可能性を推測している文献があった（文献23）が、我々の調べた11例には重積の原因を示唆する所見を見いだせなかった。

最内筒が消失して石灰化が残される機序に関して、図6 A,B に図示したが、最内筒の腸間膜血管は引き伸ばされ、内筒の内部に押し込められるために血行が悪くなり、壊死するものと考えられる。内筒内に散在性に取り残された石灰化巣この名残りと考えられる。

ポリープ状の内筒が閉鎖端から離れた部位に見られる機序に関して、Hayashida ら（文献16）は先端部が先ず癒着して、基部が壊死したためと説明しており、彼等の写真は我々の図1D にそっくりだが、ポリープ基部と盲端の間の構造については記載していない。Gherardi（文献17）らは、内筒が二箇所で外筒と融合した症例を報告しているが、おそらく彼等の意に反して長軸方向と側方からの陥入によると考察で述べさせられている。しかし、側方からの陥入では、図5上に示すように輪切りにすれば一続きの壁ができるはずで、Gherardi らの症例や我々の症例1, 2 の部分的な二重構造や二枚の壁の癒着は説明できず、内筒と外筒が融合した（図5下）としか考えられない。症例3で内筒と外筒に向い合せにみられた縦走潰瘍（図3）と、症例2でポリープの根元近くに見られた縦走潰瘍（図2D）が内筒一外筒融合の機序を示していると我々は考える。図6 D,E に示すように、内筒内に寿司づめになった腸間膜による圧迫で、内筒の一部が壊死し、破れて飛び出した腸間膜が外筒にこすれて外筒にも縦走潰瘍を形成し（図2D, 3），これらの向かい合わせの縦走潰瘍が癒着した後、血行の悪い内筒より外筒の方が早く成長して図6 F に示すように図1B,C, 図2B で見られた構造を形成するを考えた。癒着部に纖維化がごくわずかのは胎児期の組織壊死に対する反応の特徴（文献3）と考える。

論文審査の結果の要旨

本研究は、空腸、回腸閉鎖43例の自験例を検討し、このうち11例の腸重積を伴う閉鎖について、特に重積部と閉鎖部が離れて見えるものについて、肉眼的、組織学的に詳細に検討し、その成因を研究したものである。

腸重積を伴う小腸閉鎖はまれな奇形であるが、多数例について検討されたものは文献的検討やアンケート調査の結果の一部として触れられているもののみで、極めてまれなものとされてきた。特に1991年に重積が閉鎖の結果ではないかという提言がなされてからは、極めてまれというわけではないと臨床現場で認識されはじめたことも加わって、症例報告も少ない。本研究は、腸重積を伴う小腸閉鎖について、多数の症例を形態学的に詳細に検討した初めての報告である。検討の結果として、母胎内で起こった腸重積が通常の3重構造を取らずに最内筒の消失を起こすことについての、過去に提示され引用され続けている過った図解を訂正し、重積が閉鎖の結果ではないかという提言に対して組織所見

に基づいて反論しており、空腸、回腸重積の一部が母胎内で起こった腸重積に因るものであるという重要な提言をもたらしている。一方、重積部と閉鎖部が離れて見えるものは極めてまれで、過去に二例の報告が一編あるのみであるが、その複雑な構造についての解釈が困難で、腸管の方向に対する輪切りの標本で検討されておらず、成因は十分に解明されていない。また、重積部の内筒と外筒との融合を示した報告は一例のみで、しかもおそらくは査読者によって長軸かつ短軸方向の重積という過った考察に導かれている。本研究においては、離れていた二例と他の一例に見られた所見の詳細な検討から、内筒に詰まった腸間膜が内側から内筒を破って、それに接する外筒に線状潰瘍を形成し、破れた部分と潰瘍が癒着して内筒と外筒が融合する機序を図解し、長軸かつ短軸方向の重積では説明できないことを示すことにはじめて成功している。

本研究は、空腸、回腸閉鎖の四分の一という高い頻度、母胎内で起こった腸重積が小腸閉鎖の原因になりうることと、見過ごされかねない特殊な形態を取りうることを示したことによって、小腸閉鎖の原因として従来軽視されてきた腸重積の重要性について、再認識を喚起しており、小腸閉鎖の概念を修正する意味で重要な知見を得たものとして価値ある集積であると認める。よって、本研究者は、博士（医学）の学位を得る資格があると認める。