

食道気管瘻再開通のために失った 先天性食道閉鎖症 (Gross C 型) の一例

渡邊 至, 芦野 吉和, 大河内 信弘
渡辺 修一*, 堺 武男*
白井 恵一**

先天性食道閉鎖症は、新生児期に緊急処置が要求される極めて重篤な消化管奇型であるが、近年では本邦でもその治療成績の向上が著しい。重症な肺炎や大血管奇型等の重大な合併症のない限りは、適切な処置により治癒に導き得る疾患と考えてよい。本院では昭和51年以降、2例の先天性食道閉鎖症を経験しているが、一例には胃瘻造設が行えたのみであり重症肺炎から新生児特発性肺出血がおこり死亡している。

第二例目は一期的非開胸根治手術が施行され、術後経過も良好であったものが退院後二ヶ月目で食道気管瘻の再開通という極めて稀な合併症のために失った。いわば痛恨の症例をここに記述し、本症術後の食道気管瘻再開通に関して若干の文献的考察を加える。

症 例 報 告

症例 F.S. 生後4日、女児

既往、現病歴：健康な両親の第1子。妊娠41週にて吸引分娩、Apgar 指数7、生下時体重3,320g、妊娠経過中に羊水過多、母親の罹患、服薬等の特記すべきことはない。

生後4日、唾液の過多、ブドウ糖液の哺乳不能があり、食道内に挿入したネラトン管のcoil-upを認めたため、先天性食道閉鎖症として市内某院産科より紹介された。チアノーゼ、呼吸困難はなかったと言う。

現症：来院時、生後4日目の女児、体重3,040g、一般状態は比較的良好で脱水、黄疸、呼吸困難

も著明ではない。頻回の口腔内吸引が行われていた故か、胸部聴診では右上肺野に湿性ラ音を認めるのみであった。腹部は含気性に膨隆している。肝、脾を触れない。

脈拍120/分、呼吸数32/分。体温35.8°C、心音は正常、臍ヘルニア、頭部皮下血腫を認めるが他の合併奇型はない。

検査所見：血清蛋白5.0g/dl、血清Na132mEq/L、K3.7mEq/L、Cl97mEq/L、RBC421×10⁴/mm³、WBC9,000/mm³、Hb14.1g/dl、Ht43.7%、動脈血pH7.369、PCO₂40、1mmHg、BE-2.1mEq/L blood、Stand-Bicarb、21.7mEq/L—plasma、Act-Bicarb22.7mEq/L plasma、O₂ saturat57.0%、PaO₂30.5mmHg。

再度透視下にネラトン管を挿入してそのcoil-upを確認した(写真1)。

上記諸検査の結果、先天性食道閉鎖症(Gross C型)、WatersonのRisk B^{1,2)}に相当する症例と診断し、来院後6時間で根治手術を施行した。

手術所見 ①

経鼻気管内挿管GOF全麻下にてまず上腹部正中切開をおき、胃瘻を作成する。

次いで左側臥位とし、右腋窩よりWaterstonの皮切をおき第5肋間を得、胸膜外に縦隔に達する。奇静脈を上大静脈より切離し、下部食道上端が気管分岐部に交通する気管食道瘻を切離する。瘻孔内径は約2mm。気管壁は0-4tevdek系にて2層に閉鎖する。口側食道の盲端より下部食道上端までの距離は2cm。細く脆弱な下部食道上端の気管瘻部を約5mm切除し、下部食道断端孔を開大したのち、口側盲端部食道粘膜を下部食道断端全層と0-4 chromic catgutにて結節縫合、更に0-4血

仙台市立病院外科

* 同 小児科

** 東北大学麻酔科

管縫合糸により全周7針筋層外膜吻合を施した。即ち Haight による telescope 吻合³⁾である。

肋膜外にベンローズドレーンをおき、胸壁肋膜

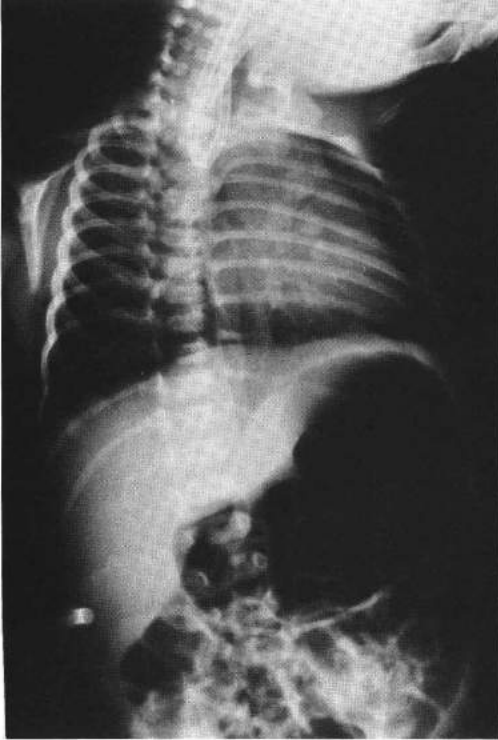


写真1. 初回来院時、ネラト管の coil-up と胃の膨大を認める (第1斜位)。

の破損部位を修復し肋間を閉鎖、皮膚縫合にて術を終えた。

術後経過 ①

術後は経鼻気管内挿管のまま帰室し、baby bird respirator による CPAP を持続したが、翌日術後 18 時間で気管チューブを抜去した。以後、経鼻的に 3 日間 CPAP による補助呼吸を継続している。胸壁肋膜と胸壁間においたドレーンよりは僅かな排液を認めるのみであった。該部の残気は特に吸引していない (写真 2)。

術後 5 日、胃瘻よりの経管栄養を開始。術後 11 日食道透視 (写真 3a) にて縫合不全、狭窄のないことを確めた後、経口栄養を開始した (3,080 g)。術後 15 日、再度食道透視を施行 (写真 3b)、吻合部に軽度の狭窄を認めたが、胃瘻ゾンデを抜去し、補育器を離脱した (3,280 g)。

術後 22 日、体重は 3,530 g となり哺乳、呼吸状態共に良好で退院した。

術後 2 ヶ月体重は 4,800 g (標準 5,520 g) となり、特に理学的所見もなく、臍ヘルニア、頭部血腫も自然治癒していた。

術後 2 ヶ月 4 日目、風邪様の症状あり近医を受診、抗生物質の投与を受けた後、全身に発疹を認め、発熱 37.6°C。以後 4 日間病状の改善をみず、哺乳力の低下、呼吸困難もあり、当院小児科に入

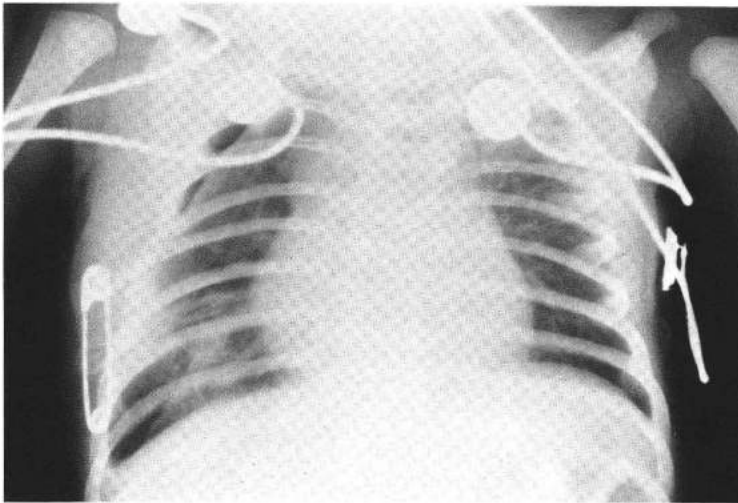


写真2. 初回術後 3 日目、CPAP 持続中の胸部レ線像。右胸膜外の残気は 4 日後には消褪した。

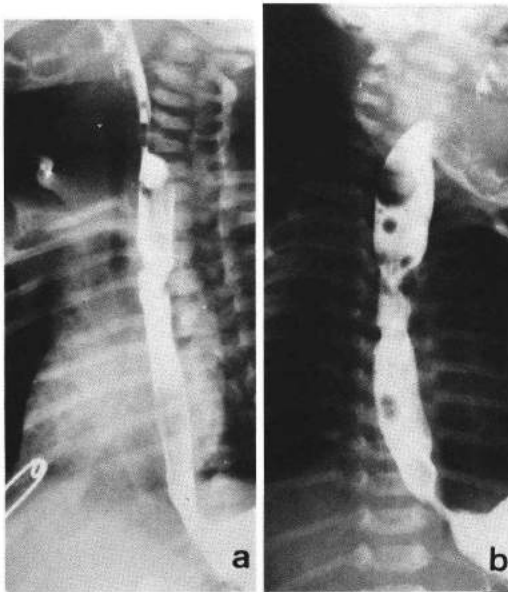


写真3. a: 初回手術々後11日の食道造影, 経鼻管より造影剤注入, 第2斜位。
b: 初回手術々後15日の経口の食道造影。食道吻合部に軽度の狭窄を認める。

院する。

入院後はグループ性肺炎或いは細気管支炎の診断のもとに、O₂ テントに収容し、抗生物質の投与と頻回のネブライザーの施行が続けられ、状態の改善が得られている。しかし、呼吸数78~81/分、チアノーゼはないが陥没呼吸が常時認められていたと言う。

状態改善後は少量の経鼻胃管栄養を開始しているが哺乳後腹満高度となり、胃管より毎回20~80 mlの脱気により症状が改善していた。哺乳後、肺ラ音の亢進することが時に認められたこと、胃内ガス量が異常に多いこと(写真4)、また肺レ線像の良好なのに比し、陥没呼吸が持続する点等から、気管食道瘻の再開通を疑い再入院後10日目、および12日目に気管支造影剤を用いた食道透視を施行し(写真5a-b)にみられる食道気管瘻の存在を証明した。その時点での血液検査(単位略)では、RBC 416×10⁴, WBC 14,700, St 3%, Seg 46%, Mo 2%, Ly 49%, Hb 11.0, Hct 34.7, 血小板 33.7×10⁴, 血清 Na 134, K 4.8, Cl 106, Ca 9.3, P 2.1, であり、食道気管瘻の再開通として、初回術後2ヶ

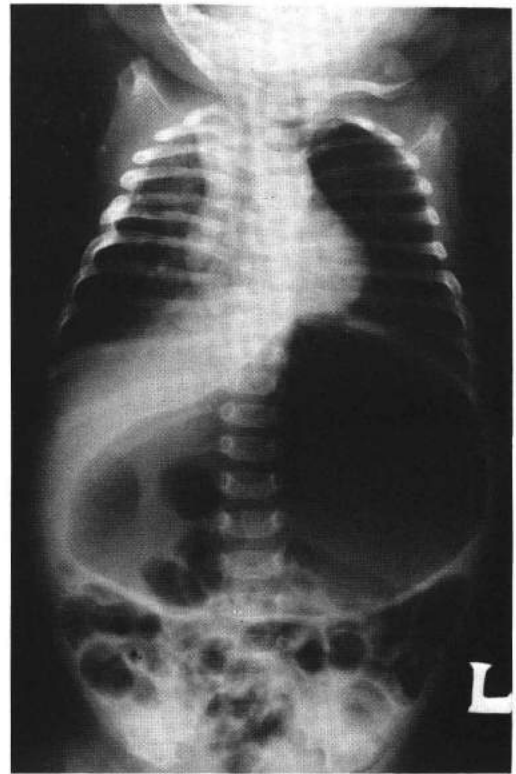


写真4. 再入院時の胸腹部レ線像。
右肺上葉の拡張不全と胃の高度な含気性膨大。

月16日、患児年令2ヶ月3週で再手術を施行した。

手術所見②

経鼻気管内挿管 GOF 全麻下に右側胸部の手術創を切除し、再度第5肋間を得、開胸する。右肋膜腔に癒着高度であり、右上葉は既に拡張不全に陥っており硬いが他肺葉に著変はない。

後縦隔で、含気性に膨大し、人工呼吸により拡張をくりかえす食道に達し、これを口側に剝離する。先回手術操作後の線維性の癒着を鈍的に剝離し、漸く食道前面より主気管後面に通ずる気管食道瘻に達する。先回の瘻孔閉鎖部、食道吻合部は、縫合糸の残留あるいは小膿瘍の形成もなく確認し得なかった。

第3胸椎の高さにある気管食道瘻を鋭的に切離し、食道壁を2層に縫合閉鎖し、気管側は0-4tevdekで2層に閉鎖、更に微量のアロンアル

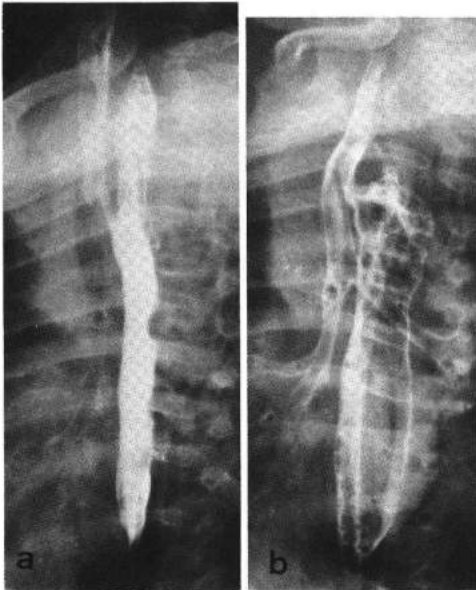


写真5. a: 再入院時の食道造影による第3胸椎高にある気管食道瘻
b: 同じく気管食道瘻再開通の食道透視造影による証明
下部食道の含気性拡張も図める。

ファをここに加えた。air leak のないことを確かめ、食道壁を修復、第6肋間より持続吸引ドレーンを留置し閉胸した。

術後経過②

経鼻挿管のまま帰室し調節呼吸 (IMV 24/分, FiO_2 0.4, flow 10 L/分, P 4~20 cmH_2O) を開始する。

胸腔ドレーンは -7 cmH_2O にて持続吸引を施行した。術後9時間、呼吸数 30~40/分、血圧 100~70、体温 37°C、脈拍 140~160/分とほぼ安定した経過をとり、翌朝の検査 (単位略) では RBC 354×10^4 、Hb 9.4、Ht 28.9、WBC 23,900、St 12、Seg 79、E_o 0、B_a 0、M_o 0、Ly 9、pH 7.430、 PCO_2 37.8、BE 0.7、St bicarb 25.0、Act Bic 24.8、Total CO_2 25.9、Hb 8.6、 O_2 -sat. 96.8、 PaO_2 96.7、Na 139、K 4.4、Cl 103、Ca 8.5、P 3.1と白血球増多以外はほぼ満足すべき結果であった。しかし術後12時間頃より陥没呼吸、呼吸数の増加 40~50/分が認められ、頻回の喀痰吸引によっても多量を得ず、呼吸停止をみるに至った。

胸部マッサージ、調節呼吸により回復したが、その後もチアノーゼ、呼吸停止、心停止があり蘇生術3回、一時気管チューブの抜管と再挿入を行っているが、チューブ内の閉塞はなく、やがて気管チューブの再挿入も不能となり再手術後18時間、気道閉塞により貴重な症例を失った。

剖検の許しはどうしても得られなかった。

考 察

TEF 再発の頻度:

先天性食道閉鎖症 (Gross C型) の術後合併症としては、食道吻合部の縫合不全あるいは狭窄が主なものであり、気管食道瘻 (以下 TEF と略) の再開通は稀なものである。もっとも術後早期の縫合不全による TEF 再開通は往々経験されるものと思われるが、術後数ヶ月を経たからの再開通は極めて稀とみられる。

本邦では橋本ら⁴⁾による TEF 再発 40 例の検討があるが、土田ら⁵⁾によれば略々 5% の発生率が想定されている。欧米の文献によれば先天性食道閉鎖症根治術の 100 例以上の症例を有する施設で Louhims 252 例中 13 例⁶⁾、Leven 103 例中 4 例⁶⁾、Koop 249 例中 9 例⁷⁾、Humphreys 101 例中 0 例⁸⁾、と 0% から 7.5% に術後 TEF 再発があったが、Kafrouni による 1970 年の集計では 578 例中 64 例⁹⁾ 13% と高い。特に extrapleural に根治手術が施行された症例に多いと言われる。

TEF 再発の原因:

本症例の如く、術後数ヶ月を経過した後の TEF 再発の原因として最も言われていることは、食道吻合部あるいは気管瘻閉鎖部の小膿瘍の形成である^{4,10)}。術直後の所謂 minor leak が不顕性に持続し、あるいは縫合糸周辺の膿瘍が器質化されずに残存し、長期を経た後に自潰して瘻孔を形成することである。

しかし、本症例では再手術時、該部にはその様な所見は全く認められず、文献上にも記されている様な、陳旧性の縦隔炎による強固な結合織が再発 TEF への到達を防いでいた。再発 TEF の手術に際し、小膿瘍があったと明確にのべているものは少ない。

TEF 再開通の原因としてもう一つ、極小 TEF の長期間の不顕性の残存が考えられる。初回手術直後の縫合不全により形成されたものが不顕性のままあり、TEF の内腔は上皮化され、治癒しないまま残存するものである。いずれにしても臨床的に全く症状を呈しないまま経過する例も多いと考えられるがそれらのうちどれ程の症例が重篤な TEF 再開通として発症するかは不明である。

本症例でも術後 22 日の単純胸部レ線像で含気性の食道像を認めたこと、右上肺野に不明確ながらも拡張不全様の陰影を認めたことを想起し、その存在も否定し得ないと考える。しかし TEF 再開通の部位は、初回の TEF 部位よりもかなり高位にあり、疑問も残る。そのことと関連して、初回手術時の proximal TEF の見落しであった可能性も考慮される。即ち本症例で下部食道と気管分岐部の TEF のみならず、上部食道と上位気管にも極小の交通と有する Gross D 型食道閉鎖症であった可能性である。しかし初回手術時、口側食道盲端の授動は容易であり、盲端部は膨大し口側に約 2 cm は剥離授動されており、ここに稀なる TEF があったとは言えない。

TEF 再開通の原因として最も考えられることは Humpreys⁹⁾ (彼は一例も経験していない) のべる如く、初回 TEF 閉鎖術時の気管側断端の処理法の問題である。気管膜様部の meticulous closure が必要であると言う。

本症例ではそれを tev-dek 0-4 系にて 2 層に閉鎖しているが、特に気管軟骨部、膜様部を十分に露呈する程の剥離は加えていない。いずれの原因を考慮しても食道吻合部と気管瘻処理部位が近接した状態におかれる点が TEF 再発の要因となり得るので、肋膜外到達法で根治手術が施行された場合には、意識的に食道を rotate させておくとか、pleural flap あるいは何らかの組織をこの間に介在させておく操作も必要であろう¹¹⁾。

Hewlett¹²⁾ は上記の事項に加えて食道吻合部の狭窄に対する早期の拡張術も TEF 再開通の原因となると述べている。

TEF 再開通の診断:

前述の如く本疾患の診断は、その存在の可能性

をかなり執拗に疑ってかからないかぎり困難である。術後の小さな TEF は重篤な症状のない限りは、気管支炎、風邪をひき易い等のことで見逃され、時には自然に治癒してうものもあると考えられる。一方、診断未確定のために死亡する症例もあり⁵⁾、診断は重要である。

TEF 再発の徴候としては、難治性の肺炎、流動物摂取後のチアノーゼ、啼泣時、哺乳後の鼓腸、特に胃部膨満等があげられているが、瘻孔の大きさによって夫々の程度は区々である。Haight^{3,13)} は本症根治術後長期にわたって肺感染症がおきる場合は TEF 再開通を考えるべきであるとのべているが、食道の高度な狭窄によるものもあったと言う。本症例においては、術後 2 ヶ月目に発疹を伴う風邪様の症状があり、クループ性肺炎としての加療で症状の改善をみており、胃の含気性高度の膨満をみるまでは、TEF 再発は疑われていなかった。

確定診断のためには造影剤による食道透視造影が施行されるが、その際、気管支造影の所見が現われても、誤飲かと思逃されることがある様で、本例でも 2 回の造影操作で漸く TEF の存在を確認している。造影剤は水溶性の気管支造影剤を使用するとよく、また先天性食道閉鎖症の初回の診断時にもネラトンの coil-up の所見のみでなく、上述の造影剤を使用すれば確実に上部食道盲端部の高さを判定することが出来、また上部食道と気管の交通 (Gross B 型, D 型) を見落すこともない利点があると考えられる。

TEF 再開の診断のために気管内視鏡により経口投与したメチレンブルーを直視する方法¹⁴⁾、或いは逆に気管内に注入した色素を食道内視鏡で確める方法¹¹⁾、Koop の言う食道内チューブによる TEF 部の呼吸音の聴取¹⁵⁾ 等いろいろの方法があり、その診断の困難なことを物語っているが、TEF の高さ、瘻孔の太さ、長さの判定のためには造影が最も有用であると考えられる。また Haight-橋本ら⁴⁾ の言うバルーンカテーテルを用いて食道内を造影剤で充満し TEF を描出する操作も、患児の体位 (腹臥位にして造影剤が前方の気管に流入する……) を考慮して造影を慎重に行

うかぎり、特に必要とも思われない。

TEF 再開通に対する処置とその予後：

本疾患の予後は楽観出来るものではないが、再手術成功例で処置された事項を参照すると、診断確定について、まず脱気と栄養とをかねた胃瘻造設が行われているものもあるが⁴⁾、多くは胃瘻造設なしに再手術が施行されている^{9,11,16)}。慢性の嚥下性肺炎の治療が充分に行われてからの再手術が望ましいことは当然で更に Haight¹³⁾ は早期に発見された TEF の再開通、これはおそらく残存 TEF であるが、これに対し初回手術後 2~3 ヶ月は局所の線維性の癒着が高度であるため再手術を待機すべきであるとのべている。

上記の処置によっても肺炎、呼吸状態の改善のみられない場合には、再発 TEF の根治術が強行されなければならないであろう。初回非開胸肋膜外操作が行われたものでは開胸操作により再開 TEF の離断が施行されるが、三重結紮のみで治癒を得た報告⁴⁾もある。また Slim¹⁶⁾ は、左側胸部よりよ非開胸、肋膜外到達法により、初回術後の縫合不全による残存 TEF の処置を比較的容易に行い、2 例の成功例をあげている。

本症例に対してとられた処置を反省してみると、先述の診断が遅れたことに加えて、次に一応は胃瘻を作成してみることも一方法であったのであり、術前の胸部所見の判断と異り、予想以上の肺炎があったため、術後の換気不全と、原因不明の気道閉塞が紹来されたものと考えられる。

本症の予後は Falletta の集計¹⁹⁾では 30 例中、生存 13 例、うち 1 例は自然治癒、Koop は 9 例中 5 例治癒¹⁴⁾とあり、本邦では橋本らの集計⁴⁾で 40 例中治癒 19 例うち 1 例は自然治癒とある。この集計で死亡 21 例中 8 例は非再手術例であった。即ち再手術例 31 例中 13 例 (42%) が死亡し非手術例 9 例中 8 例が死亡とあり、本症に対してとられるべき方法は自ら明かである。嚥下性肺炎が認められないか軽度の場合も初回手術後早期であれば待機期間をもつべきであり、数ヶ月を経た後のものでは直接的 TEF 離断或いは結紮が施行し得る。しかし肺合併症の高度なものでは腹部の減圧をかねての胃瘻造設と、それによる栄養補給さらには

絶飲食下での中心静脈栄養法¹⁶⁾の管理のもとで出来るだけ保存療法の継続により呼吸栄養状態の改善と該部の癒着性の消退をまって、自然治癒のなにかぎりには根治手術を施行するのが最良の処置と考察される。

文 献

- 1) 岸田, 他: 食道閉鎖の術前処置, 小児科・内科, **7**: 1017~1025, 1975.
- 2) Waterston, D.J. et al.: Oesophageal Atresia, Tracheo-Oesophageal Fistula, *Lancet*, **1**: 819, 1962.
- 3) Haight, C.: Congenital Esophageal Atresia and Tracheo-esophageal Fistula, in "Pediatric Surgery (I)" 2nd Ed. 1969, Chicago.
- 4) 橋本, 他: 先天性食道閉鎖症術後の気管食道瘻再発症例の検討 —特に単純結紮法にて治癒せしめ得た一例— 小児科・内科, **7**, 1097-1102, 1975.
- 5) 土田, 他: 先天性食道閉鎖症術後における気管食道瘻再発について, 外科診療, **84**, 1496-1501, 1968.
- 6) Leven, N.L. et al.: Surgical management of congenital Atresia of Esophagus with tracheo-esophageal Fistula. *Ann. Surg.*, **136**, 701-719, 1952.
- 7) Koop, C.E. & Hamilton, J.P.: Atresia of the Esophagus: Factors affecting survival in 249 cases, *Kinderchir.* **5**, 319-333, 1968.
- 8) Humphreys, G.H. et al.: Congenital Atresia of Esophagus, *J. Thorac. Surg.* **32**, 332, 1953.
- 9) Kafrouni, G. et al.: Recurrent Tracheoesophageal Fistula: A diagnostic Problem, *Surgery*, **68**, 889-900, 1970.
- 10) Falletta, G.P.: Recommunication on Repair of congenital Trachesesophageal Fistula, *Arch. Surg.* **88**, 779-786, 1964.
- 11) Stanford, W. et al.: Recurrent Tracheo esophageal Fistula, *Ann. Thorac. Surg.* **15**, 452-455, 1973.
- 12) Hewlett, T.H.: Recurrent Tracheoesophageal Fistula, *J. Thorac. Surg.* **29**, 658-664, 1955.
- 13) Haight, C.: The management of congenital Esophageal Atresia and Tracheo-esophageal Fistula, *Surg. Clin. North. Amer.* **41**, 1281, 1961.
- 13) Haight, C.: The management of congenital

Esophageal Atresia and Tracheo-esophageal Fistula, Surg. Clin. North. Amer, **41**, 1,281, 1961.

- 14) Killen, D.D.: Endoscopic catheterization of H-type Tracheoesophageal Fistula, Surgery, **55**, 317-320, 1964.
- 15) Koop, C.E. et al.: Treatment of Atresia of

Esophagus by Transpleural Approach, Surg. Gynec. Obstet. **98**, 687-692, 1954.

- 16) Slim, M.S. & Tabry, I.F.: Left extrapleural approach for the repair of recurrent tracheoesophageal fistula, J. Thorac. Cardiovas. Surg. **68**, 654-657, 1974.

(昭和55年2月12日 受理)

強い殺菌力 そして 高い血中濃度

合成ペニシリン

パセトシン[®]
カプセル・細粒



協和醸酵工業株式会社
特許許諾 英国ビーチャム社



★使用上の注意
投与に際しては使用上の注意を十分にご参照下さい。