

第71回直腸肛門奇形研究会

プログラム・抄録集

会 長：窪田 昭男 和歌山県立医科大学 第2外科

会 期：2014年10月30日(木)

会 場：兵庫県立淡路夢舞台国際会議場
第2会場(レセプションホールB)

事務局：〒641-8510 和歌山市紀三井寺811-1
和歌山県立医科大学 第2外科 担当：渡邊 高士
TEL：073-441-0613
FAX：073-446-6566
E-mail：kubota@wakayama-med.ac.jp

第71回直腸肛門奇形研究会

会長挨拶



第71回直腸肛門奇形研究会

会長 窪田 昭男 (和歌山県立医科大学 第2外科)

今回の主題は「高位鎖肛に対する至適術式 —PSARP 対 LARRP の徹底比較—」とさせて戴きました。

1982年にPenaがPosterior Sagittal Approachによる直腸肛門形成術(PSARP)を提唱した。その最大の功績は排便に関わる筋群の解剖を明らかにしたことであるが、それは従来考えられていたものと大きく異なっていた。同時に、正中切開した筋群の中心に直腸を置く術式によって良好な排便機能を得ることを示したことである。PSARPは1985年に我が国にも導入され、次第に普及し、やがて一世を風靡するに至った。一方、2000年にGeorgesonが腹腔鏡補助下直腸肛門形成術(LARRP)を報告したが、折からの腹腔鏡ブームと相俟って、骨盤邸筋群を切開しないこの“minimum invasive surgery”は急速に普及し、PSARPに取って代わった感がある。しかし、先頃の高施設共同研究でも明らかにされたようにLARRPはPSARPを圧倒的に凌駕する術式にはなっていなかった。また、何れの術式も再現性が確立された理想的な手術と呼ぶには幾つかの課題が残されているように思われる。本研究会では、それぞれの術式の至らないところを虚心坦懐に振り返り、今後の術式の改良の糧とし、理想の術式が確立される一助としたい。

招待講演は、PSARPの提唱者であり、これまでにPSARPを高位鎖肛に対する一期的根治術として○例、再手術として○例を行ってこられたAlberto Pena教授とご夫人で小児外科医のAndrea Bischoff先生を予定しておりましたが、よんどころない事情で来日できなくなってしまいました。また、シンポジウムにも参加して戴く予定でしたが、代わりにビデオでそれぞれ“ANATOMIC CONSIDERATIONS OF ANORECTAL MALFORMATIONS”- A Posterior Sagittal Perspective”と“INDICATIONS AND CONTRAINDICATIONS OF LAPAROSCOPY VERSUS LAPAROTOMY AND POSTERIOR SAGITTAL APPROACH IN ANORECTAL MALFORMATIONS”を発表して戴きます。予め、想定質問を沢山用意し、それに対する回答を載いておりますので、併せて報告したいと思っております。

プログラム

10月30日(木) 第2会場(レセプションホールB)

開会のあいさつ 13:10～13:15

会長：窪田 昭男(和歌山県立医科大学 第2外科)

直腸肛門奇形研究会
日本小児内視鏡外科・手術手技研究会 合同企画

招待講演(第1会場にて)

13:15～14:15

座長：窪田 昭男(和歌山県立医科大学 第2外科)

1 ANATOMIC CONSIDERATIONS OF ANORECTAL MALFORMATIONS -A Posterior Sagittal Perspective.

Alberto Peña and Andrea Bischoff Cincinnati Children Hospital

2 INDICATIONS AND CONTRAINDICATIONS OF LAPAROSCOPY VERSUS LAPAROTOMY AND POSTERIOR SAGITTAL APPROACH IN ANORECTAL MALFORMATIONS.

Andrea Bischoff and Alberto Peña Cincinnati Children Hospital

直腸肛門奇形研究会
日本小児内視鏡外科・手術手技研究会 合同企画

シンポジウム(第1会場にて)

14:15～16:05

(発表6分・総合討論56分)

座長：前田 貢作(兵庫県立こども病院 外科)

窪田 昭男(和歌山県立医科大学 第2外科)

[高位鎖肛に対する至適術式 —PSARP 対 LARRP の徹底比較—]

*：日本小児内視鏡外科・手術手技研究会の応募演題

S-1 高位鎖肛症例における骨盤底筋群の多様性

渡邊 芳夫 あいち小児保健医療総合センター

S-2 男児高位鎖肛に対する腹腔鏡補助下高位鎖肛根治術の術後排便機能と晩期合併症に関する多施設共同研究

石丸 哲也 直腸肛門奇形研究会 男児高位鎖肛に対する多施設共同研究準備委員会

- S-3** 新生児期一期的 PSARP の術後排便機能評価に関する検討
中村 恵美 東北大学病院 小児外科
- S-4** 表在括約筋切開を加えた仙骨会陰式直腸肛門形成術
—特に括約筋切開と直腸剥離を最小限にする工夫について—
小森 広嗣 都立小児総合医療センター 外科
- S-5*** 男児鎖肛直腸尿道瘻に対する腹腔鏡補助下根治術 当科の工夫 続報
古賀 寛之 順天堂大学 小児外科
- S-6** 当科における男児高位鎖肛における PSARP 施行症例と
LAARP 施行症例の術後排便機能の比較
八木 誠 近畿大学 外科学教室 小児外科部門
- S-7*** 腹腔鏡下高位鎖肛根治術時の直腸断端の血流評価における HEMS の有用性
山田 耕治 愛媛大学医学部 消化管・腫瘍外科
- S-8*** LAARP と PSARP 術後の MRI による解剖学的評価
—LAARP を推進する立場として術式における改善点はあるか—
東間 未来 埼玉県立小児医療センター
- S-9** 高位鎖肛に対する PSARP と LAARP の術後排便機能の検討
奈良 啓悟 大阪大学 小児成育外科

一般演題1 [総排泄腔遺残症]

16:10～16:38

(発表 4分・質疑応答 3分)

座長：石橋 広樹(徳島大学 小児外科・小児内視鏡外科)

- 1-1** 総排泄腔遺残症における骨盤底筋群の3DCT 所見
大島 一夫 あいち小児保健医療総合センター 小児外科
- 1-2** Covered cloacal extrophy の一例
福田 篤久 自治医科大学 小児外科
- 1-3** Covered cloacal exstrophy の女児例
野口 侑記 大阪府立母子保健総合医療センター 小児外科
- 1-4** 腹腔鏡補助下に直腸のみの pull-through を施行した総排泄腔遺残症の1例
中原 康雄 独立行政法人国立病院機構岡山医療センター

一般演題2 [肛門狭窄症、直腸閉鎖症]

16:38～17:20

(発表4分・質疑応答3分)

座長：渡邊 稔彦(国立成育医療研究センター 外科)

- 2-1** 肛門皮膚瘻と鑑別を要した肛門狭窄症の1例
中田 光政 千葉大学大学院医学研究院
- 2-2** 乳児期に排便困難を呈して発見された anorectal stenosis の3例
廣瀬 龍一郎 福岡大学 呼吸器・乳腺内分泌・小児外科
- 2-3** 人工肛門を造設した直腸閉鎖の1例
青井 重善 京都府立医科大学 小児外科
- 2-4** 直腸閉鎖症の1例
前田 健一 国立成育医療研究センター
- 2-5** 排便回数増加と肛門周囲膿瘍で発見された、直腸膜様狭窄の1乳児例
竹添 豊志子 国立成育医療研究センター 外科
- 2-6** 直腸-背部膿瘍を形成した Currarino 症候群の1例
藤村 匠 慶應義塾大学 小児外科

一般演題3 [稀な病型の直腸肛門奇形]

17:20～17:48

(発表4分・質疑応答3分)

座長：河野 美幸(金沢歯科大学 小児科)

- 3-1** 高位鎖肛を合併した caudal regression syndrome の1例
林 宏昭 田附興風会医学研究所 北野病院 小児外科
- 3-2** 初診時に8歳であった低位鎖肛(肛門皮膚瘻)の1例
田中 夏美 愛染橋病院 外科 小児外科
- 3-3** 巨大肛門ポリープを伴った女兒低位鎖肛の1例
石橋 広樹 徳島大学病院 小児外科・小児内視鏡外科
- 3-4** 女兒の anovestibular/anovulvar fistula に Cut Back 手術を施行した3例の経験
奥山 直樹 新潟県立中央病院 小児外科

登録症例集計および症例検討

藤野 明浩(慶應義塾大学 小児外科)

17:48～18:30

閉会の辞・次期会長挨拶

18:30～18:35

会 長：窪田 昭男(和歌山県立医科大学 第2外科)

次期会長

直腸肛門奇形研究会
日本小児内視鏡外科・手術手技研究会
合同企画

招待講演

招待講演 1

ANATOMIC CONSIDERATIONS OF ANORECTAL MALFORMATIONS - A Posterior Sagittal Perspective.

Cincinnati Children Hospital

Alberto Peña and Andrea Bischoff

It is obvious that the reconstruction of the ano-rectum or any other operation performed in the anorectal area requires a precise knowledge of the intrinsic anatomy of this area, in order to avoid damage that may result in serious functional consequences sequelae.

In 1980, the posterior sagittal approach, used to repair anorectal malformations, allowed us to see directly the intrinsic anatomy of an area that had been, until then, the source of speculations, imagination and fantasies. This approach has been performed in over 2500 cases, which represent the basis of these observations. It is now clear that:

The so called “Pubo-rectalis sling”, as well as other portions of the sphincter mechanism (superficial external sphincter, deep external sphincter, pub coccygeal, ischiococcygeal, and pubo-urethralis) does not exist as isolated structures in the way traditionally described. Interestingly, those structures have been shown repeatedly through history, mainly in artistic renditions and diagrams, but not in real photographs.

The direct exposure to the real anatomy shows that the sphincter mechanism is rather a funnel-like, striated muscle structure that extends in continuity from the medium portion of the pelvis, all the way down to the perineal skin. The electrical stimulation of this structure elicits different types of contractions, depending on the specific location of the stimulation. There is no objective way to identify the anatomic structures traditionally described.

In cases of anorectal malformations, the sphincter mechanism is represented by a spectrum that includes cases with almost absent sphincter, to benign cases with a sphincter mechanism similar to the one seen in normal individuals.

These anatomic concepts have found a very significant resistance to be accepted, in spite of the evidence shown in real pictures.

The first posterior sagittal surgical explorations were performed with the specific purpose to see directly the anatomic structures traditionally described. As previously mentioned, those structures were not and have not been identified after thousands of surgical explorations. However, the posterior sagittal approach allowed us to learn about

other more important aspects of the anatomy of patients with anorectal malformations. These included the peculiar way in which the rectum joins the urogenital structures. We were able to describe for the first time the common wall existent in the cephalad portion of the fistula. This allowed us to explain the multiples complications seen in patients previously operated with blind or semi-blind techniques.

The posterior sagittal approach has been used multiple times to repair different conditions in patients without anorectal malformations; this experience allowed the authors to confirm the concepts mentioned above. This presentation will be illustrated with real photographic material

招待講演2

INDICATIONS AND CONTRAINDICATIONS OF LAPAROSCOPY VERSUS LAPAROTOMY AND POSTERIOR SAGITTAL APPROACH IN ANORECTAL MALFORMATIONS.

Cincinnati Children Hospital

Andrea Bischoff and Alberto Peña

The concepts expressed in this presentation, are based on a comprehensive literature review and the clinical experience of the authors.

Laparoscopy and other minimally invasive techniques, represent a major advancement in the field of pediatric surgery. Besides current achievements, future technological advances, will allow us to perform sophisticated surgical reconstructions in a minimally invasive fashion, with great benefit for children. Therefore, the authors fully support the continuous trend to create more ingenious technological instruments and maneuvers, to be less invasive in the management of all congenital malformations. The impact of the minimally invasive technology has been clearly felt in the management of anorectal and urogenital malformations; both, in males and in female patients.

MALES: Approximately ten percent of all anorectal malformations in males require a laparotomy in order to mobilize the rectum and pull it through. In addition, in those cases, the rectum joins the bladder neck in a “T” fashion, there is no common wall between the rectum and the urinary tract; this means the fistula can be easily dissected and ligated without injuring the urinary tract. Therefore, that group of patients represents a clear indication for a laparoscopic approach. When the fistula between the rectum and the urethra is located at the level of the prostatic urethra, the defect can be repaired either way, posterior sagittal or laparoscopically, provided the surgeon has enough experience with the procedure. However, in cases of recto-urethral bulbar fistula or those without a fistula, the rectum is located very low in the pelvis, in addition, the rectum and the posterior urethra share a common wall without a plane of separation, all of which makes the laparoscopic approach a technically demanding procedure, prone to provoke complications, including: posterior urethral diverticulum and (or) urethral injuries. On the other hand, the posterior sagittal approach used to repair these last two types of malformations, allows performing the repair in a safe, two hours, painless procedure. The patients stay in the hospital for 48 hours and 85 % of them have voluntary bowel movements after the age of three, provided they have a

normal sacrum. It is for these reasons that the authors concluded that the laparoscopic approach is contraindicated in cases of recto urethral bulbar fistula, cases with no fistula and perineal fistula.

FEMALES: Approximately 30 % of patients born with cloacas, require a laparotomy in addition to the posterior sagittal approach to be repaired. Theoretically, that 30 % group of patients suffering from cloacas, may benefit from a laparoscopic approach. Yet, the abdominal approach in these cases is done to perform very sophisticated technical maneuvers that so far have not been attempted laparoscopically. These maneuvers include the separation of the vagina(s) from the urinary tract, and the reconstruction of the urinary tract. There are several publications alluding to the “Laparoscopic repair of a cloaca”. However, those authors actually repaired only the rectal component of the cloaca leaving the patient with a urogenital sinus (which is a serious mistake) or repairing the urogenital portion via posterior sagittal. All other anorectal malformations in females can be repaired without opening the abdomen. By far, the most common defect seen in female patients is the vestibular fistula. It can be repaired with a two hour operation, the patients stay 48 hours in the hospital and 95 % of them have voluntary bowel movements by the age of three when they have a normal sacrum. Rectovaginal fistula is an extremely rare malformation, seen by the authors only in 9 cases out a 1200 female cases.

There are multiple publications comparing the functional results between the laparoscopic approach and the posterior sagittal one. The authors frequently mention that the posterior sagittal approach produces damage to the sphincter and suggest that may result in poor bowel control. Actually, there is experimental evidence that it is not the case. So far, the series presented by different authors are very limited in numbers, the comparison is not valid because the authors do not compare specific types of malformations, most of those publications still use archaic terminology such as “high,” intermediate” and “low” and do not describe the characteristic of the sacrum as well as the presence or absence of tethered cord, which are the most important factors related with the functional prognosis. In addition, most of the differences found by different authors are not statistically significant.

直腸肛門奇形研究会
日本小児内視鏡外科・手術手技研究会
合同企画

シンポジウム

〔 高位鎖肛に対する至適術式
—PSARP 対 LARRP の徹底比較— 〕

*：日本小児内視鏡外科・手術手技研究会の応募演題

S-1 高位鎖肛症例における骨盤底筋群の多様性

あいち小児保健医療総合センター

○渡邊 芳夫、高須 英見、住田 互、
大島 一夫、小松崎 尚子

【目的】 直腸肛門奇形術後の肛門機能評価は、術前の骨盤底筋群(SMC)の解剖学的相違に影響される。我々は、CT画像の3次元構築技術を用い、SMCの解剖学的形態を評価しているため、症例ごとのSMCの相違について報告する。

【方法】 高位鎖肛25例(男児20例、女児5例、総排泄腔症を除く)を対象とした。NewVES[®]を用いて、根治術前に撮影した骨盤部CTを3次元再構成し、Penaの記載したSMCの模式図と比較した。

【結果】 SMCのうちで、肛門予定部を前後方向に走行する parasagittal fibers (PFs) と、肛門予定部に向かって漏斗状に走行する vertical fibers (VFs) の形態および位置関係が、Penaの記載した図と類似した所見を呈した症例は、男児6/20、女児2/5であった。PFsが異なるものは、男児6例、女児0例であった。VFsの異なるものは、男児8例、女児3例であった。

【考察】 高位鎖肛におけるSMCは、症例ごとに異なり、術後評価には、この違いを念頭に入れた検討が必要である。

S-2 男児高位鎖肛に対する腹腔鏡補助下高位鎖肛根治術の術後排便機能と晩期合併症に関する多施設共同研究

直腸肛門奇形研究会 男児高位鎖肛に対する多施設共同研究準備委員会

○石丸 哲也、上野 滋、木村 修、
黒田 達夫、森川 康英、八木 誠、
山高 篤行、岩中 督

【目的】 多施設共同研究にて腹腔鏡補助下鎖肛根治術(LAARP)の術後排便機能と合併症を従来法と比較する。

【方法】 2000年から2006年の間に根治術を施行した男児高位鎖肛(直腸尿道瘻)症例のデータを後方視的に集計し解析した。

【結果】 15施設から81症例の登録があった(従来法36例、LAARP45例)。縫合不全、粘膜脱、肛門狭窄の発症率に有意差はなく、術後排便機能をKelly score、直腸肛門奇形研究会の臨床スコア合計点および長期予後追跡調査(JASGAP)用のスコア合計点で比較すると、いずれも両群間に有意差はなかった。術後MRIではLAARP群の34%に嚢胞状構造物を認めたが、従来法群では認められなかった。

【考察】 LAARPの術後排便機能と合併症は従来法と同等であったが、尿道後壁に嚢胞状構造物が多く認められた。多くは無症状であるが、瘻孔の処理方法にさらなる工夫が必要と考えられた。

S-3 新生児期一期的 PSARP の術後排便機能評価に関する検討

- 1) 東北大学病院 小児外科、
2) 石巻赤十字病院 小児外科

○中村 恵美¹⁾、西 功太郎²⁾、和田 基¹⁾、
佐々木 英之¹⁾、風間 理郎¹⁾、田中 拡¹⁾、
工藤 博典¹⁾、山木 聡史¹⁾、渡邊 智彦¹⁾、
仁尾 正記¹⁾

【目的】当科の中間位・高位鎖肛標準術式は PSARP である。全身状態良好例では新生児期一期根治を施行しており、今回、乳児期根治例と比較し、成績を報告する。

【方法】体表に瘻孔のない PSARP 症例を対象とした。臨床スコアを幼児期・学童期・思春期・成人期に分けて経時的変化を検討した。

【結果】症例は新生児期根治14例、乳児期根治34例。評価し得た症例のスコアは、新生児期根治は中間位のみで幼児期(6例)5.3、学童期(5例)5.8、思春期(4例)6.3、成人期(2例)12.0、乳児期根治の中間位は幼児期(10例)5.6、学童期(10例)6.4、思春期(10例)7.4、成人期(2例)9で有意差は認めなかった。合併症は新生児期根治例3件、乳児期根治例23件で前者が有意に少なかった($p=0.009$)。

【結論】排便機能は成人期でさらに上昇することが明らかとなった。新生児期根治は排便機能に優劣なく、合併症の少ない、有用な術式であると考えられた。

S-4 表在括約筋切開を加えた仙骨会陰式直腸肛門形成術—特に括約筋切開と直腸剥離を最小限にする工夫について—

都立小児総合医療センター 外科

○小森 広嗣、森 禎三郎、小林 完、
馬場 優治、緒方 さつき、山本 裕輝、
下島 直樹、廣部 誠一

鎖肛手術では括約筋と骨盤神経の温存が重要である。PSARP 法では括約筋の確認ができ、直腸の最小限の剥離と骨盤神経の温存が可能だが、筋肉切開に伴う便秘が問題となる。腹腔鏡手術では筋肉切開は避けられるが括約筋の確認が不十分となり、また直腸の剥離範囲が広く、また直腸尿道瘻処理に伴う合併症の問題がある。われわれは PSARP 法を改良した術式を2011年より11例に施行した。まず恥骨直腸筋を切開しない仙骨アプローチで直腸盲端を必要最小限の剥離で授動する。深部括約筋は左右幅が狭く、走行様式も個人差がある。その確認のため、表在括約筋を1.5cmのみ切開し深部括約筋の左右、前後の正中確認、貫通路出口部を決定する。貫通路入り口部は仙骨アプローチで恥骨直腸筋前方と尿道背側の間を剥離し、恥骨直腸筋下端の位置を会陰補助切開の視野からも確認し連続させる。その位置を深部括約筋入り口として、先の貫通路出口部へと経路を作成する。

S-5* 男児鎖肛直腸尿道瘻に対する 腹腔鏡補助下根治術 当科の工夫 続報

順天堂大学 小児外科

○古賀 寛之、岡和田 学、土井 崇、
宮野 剛、越智 崇徳、山高 篤行

【目的】 男児鎖肛直腸尿道瘻に対する腹腔鏡補助下結腸プルスルー術(G法)における当科の工夫をビデオで供覧する。

【術式】 腹腔鏡下に瘻孔を可及的に前立腺周囲まで剥離し、切離。

- 1) 狭い小骨盤内の鉗子操作のために鉗子用ポートはカメラポート近傍に設置。
- 2) 小骨盤腔での瘻孔切離操作にはカメレオンスコープを使用し、視野を確保。
- 3) 尿道付近の剥離は瘻孔漿膜を尿道に付着させ、尿道損傷を防止。
- 4) 膀胱瘻カテーテルを留置し、膀胱充満を予防。これにより良好な視野の下、瘻孔処理操作を施行。
- 5) 膀胱鏡下に尿道側瘻孔開口部よりカテーテルを瘻孔腔内に挿入、腹腔鏡下に細径カテーテル先端を確認し、遺残瘻孔長を計測。

【結果】 瘻孔長が3mm以下になるまで剥離を行ない、瘻孔基部を結紮した。排尿障害等の合併症は認めず現在経過順調である。

【結語】 中間位鎖肛であっても尿道損傷せずに瘻孔を完全切除することが可能であった。

S-6 当科における男児高位鎖肛に おける PSARP 施行症例と LAARP 施行症例の術後排便 機能の比較

近畿大学 外科学教室 小児外科部門

○八木 誠、澤井 利夫、吉田 英樹、
前川 昌平

近年高位鎖肛に対して腹腔鏡補助下に直腸肛門形成術が行われるようになってきたが、その術式、術後排便機能についてはまだ一定の見解が得られるには至っていない。今回当科において実施した PSARP 施行症例(P群)と LAARP 施行症例(L群)の術後排便機能の比較を行ったので報告する。対象はP群が4例(中間位1例、高位3例、15~20歳)とL群8例(中間位1例、高位7例、8~13歳)である。P群では1例が治療不要であるが、3例はグ浣を必要とし、うち2例は毎日施行、1例は不定期使用である。L群では3例で3歳までにグ浣が不要となり、不定期使用が3例、毎日使用が2例である。便意はP群、L群とも全例獲得している。排便造影検査ではL群の排便良好例では恥骨直腸筋の動きが良好であった。内圧検査はL群のみで6例中3例に反射を認めた。

【結果】 症例数が少ないが、当科の経験からはL群はより早期から排便機能の回復が得られる可能性がある。

S-7* 腹腔鏡下高位鎖肛根治術時の直腸断端の血流評価における HEMS の有用性

- 1) 愛媛大学医学部 消化管・腫瘍外科、
2) 愛媛大学医学部附属病院 小児外科

○山田 耕治¹⁾²⁾、近藤 琢也¹⁾²⁾、
大木 悠輔¹⁾、菊池 聡¹⁾、山本 祐司¹⁾、
吉田 素平¹⁾、佐藤 公一¹⁾、石丸 啓¹⁾、
児島 洋¹⁾、渡部 祐司¹⁾

HyperEye Medical System (HEMS) は近赤外線を可視化する画像システムであり、成人外科では術中の臓器血流やリンパ節転移の評価等に用いられているが、小児外科での報告は少ない。今回腹腔鏡下高位鎖肛根治術時の直腸断端の血流評価に HEMS を用いたの

で報告する。
症例は1歳男児。左横隔膜ヘルニアおよび Fallot 四徴症の出生前診断で在胎37週6日に出生し、高位鎖肛も認めため、2生日に横隔膜ヘルニア修復術と横行結腸人工肛門造設術を施行。術後呼吸循環状態が不安定で長期の人工呼吸管理と体動脈-肺動脈シャント術を要し、5ヵ月時に癒着性イレウス解除術も施行した。腹腔鏡下に癒着剥離と直腸遊離を行い、直腸尿道瘻を離断して会陰部に直腸を pull-through したが、断端部の色調不良を認めため HEMS を施行。色調不良部の血流障害が確認され、同部を切除した上で皮膚に縫着した。

HEMS は術中の腸管血流障害に起因する合併症を回避する上で非常に有用である。

S-8* LAARP と PSARP 術後の MRI による解剖学的評価 —LAARP を推進する立場として術式における改善点はあるか

埼玉県立小児医療センター

○東間 未来、川嶋 寛、田中 裕次郎、
藤雄木 享真、鈴木 啓介、天野 日出、
森田 香織

腹腔鏡補助下肛門形成術(LAARP)には直腸が筋筒の正中から外れる症例がある、術後の機能的評価で優位性が証明されていないなどの問題が残されている。そこで、当院の症例について MRI で術後の解剖学的評価を行った。その結果、術後 MRI で angulation があるもの(120°以下)が LAARP 群の高位の64%、中間位の80%で、PSARP 群の高位71%、中間位全例であった。排便機能は9点を越える良好群が LAARP 群で39%、PSARP 群で83%であった。LAARP での angulation 不良は深部括約筋の正中を通す際に盲目的操作となるためと考えられた。ナビゲーション手術が応用できない現状では、腹腔内から恥骨直腸筋の内側をとる経路と、会陰から外肛門括約筋の中心を通す経路との交点を見極めるために、PSARP、LAARP 両者の利点を最大限に生かして外肛門括約筋の正中切開を直視下に深部まで行い、腹腔鏡で瘻孔処理と恥骨直腸筋内側の経路を作成して盲目的操作を減らす工夫が必要である。

S-9 高位鎖肛に対する PSARP と LAARP の術後排便機能の検討

- 1)大阪大学 小児成育外科、
- 2)大阪府立母子保健総合医療センター 小児外科、
- 3)和歌山県立医科大学 第2外科

○奈良 啓悟¹⁾、曹 英樹²⁾、中島 賢吾¹⁾、
白井 規朗²⁾、窪田 昭男³⁾、奥山 宏臣¹⁾

【はじめに】我々は2003年より LAARP を積極的に導入してきた。今回、当科及び関連施設で施行した男児高位鎖肛に対する PSARP と LAARP の術後排便機能の比較検討を行った。

【対象と方法】対象は PSARP12例、LAARP 11例で、術後の排便機能評価には当研究会の排便スコア(満点8)を使用した。術後約5年でのスコアを比較した。

【結果】PSARP/LAARP の各因子の平均スコアは、便意1.3/1.2点、便秘2.3/2.4、失禁1.7/1.8、汚染は0.6/1.1であった。PSARP/LAARP の合計点はいずれも0~7点とばらつきを認め、平均スコアは3.2/3.7点で有意差はなかった。術後 MRI では、両群共に骨盤底筋群のほぼ中心を通過していた。

【結論】高位鎖肛においては、LAARP は PSARP に比べて術後排便機能に有意な差がないと考えられた。まだ症例数も少ないため今後も LAARP を続けて行く方針である。

一般演題

1-1 総排泄腔遺残症における骨盤底筋群の3DCT 所見

あいち小児保健医療総合センター 小児外科

○大島 一夫、渡邊 芳夫、高須 英見、住田 互、小松崎 尚子

【はじめに】直腸肛門奇形の治療に際して、骨盤底筋群の解剖学的位置関係は重要である。しかしながら、総排泄腔遺残症の骨盤底筋群を具体的に検討した報告は少ない。そこで、我々の経験症例について報告する。

【対象と方法】総排泄腔遺残症 15 例を対象とした。根治術前に直腸肛門部の CT を撮影し、NewVES[®]を用いて3次元再構成した。

【結果】骨盤底筋群を肛門の前後に走行する parasagittal fibers (以下 PFs) と、肛門拳筋から肛門の位置まで漏斗状に連続する vertical fibers (以下 VFs) に分けた。十分な PFs とそれに直交する 1 本の VFs を認めるタイプが 2 例、VFs が前・後の 2 本に分かれているタイプが 4 例、PFs の一部が欠損しているタイプが 9 例であった。

【考察】総排泄腔遺残症における骨盤底筋群は症例ごとに異なるので、根治術前に検討を行う必要がある。

1-2 Covered cloacal extrophy の一例

1) 自治医科大学 小児外科、

2) 同 小児泌尿器科

○福田 篤久¹⁾、小野 滋¹⁾、馬場 勝尚¹⁾、薄井 佳子¹⁾、辻 由貴¹⁾、河原 仁守¹⁾、中井 秀郎²⁾、中村 繁²⁾、川合 志奈²⁾、日向 泰樹²⁾

症例は 2 か月、女児。在胎 35 週 0 日、経膈分娩で出生。前医で総排泄腔症、両側水腎症と診断され日齢 0 に人工肛門造設術を施行された。術中に結腸を同定できず左上腹部に回腸瘻を造設された。その後、繰り返す尿路感染および右水腎症の増悪のため日齢 41 に加療目的に当院紹介となった。当院で施行した 3 管造影検査および膀胱鏡検査では虫垂の同定は困難であったが、回腸瘻の肛門側腸管は膀胱背側に連続し、さらに遠位側に盲端に終わる管腔構造を認めた。Covered cloacal extrophy の術前診断にて開腹術を施行し、結腸膀胱瘻離断術、萎縮した結腸の摘出術および単孔式回腸瘻造設術を施行した。

Covered cloacal extrophy は非常に稀な疾患で診断および治療方針の決定に苦慮することが多い。今回、総排泄腔症の診断で小腸瘻を造設された covered cloacal extrophy の一例を経験したので報告する。

1-3 Covered cloacal exstrophy の 女児例

- 1) 大阪府立母子保健総合医療センター 小児外科、
2) 同 泌尿器科

○野口 侑記¹⁾、田附 裕子¹⁾、曹 英樹¹⁾、
米田 光宏¹⁾、山中 宏晃¹⁾、野村 元成¹⁾、
児玉 匠¹⁾、白井 規朗¹⁾、矢澤 浩治²⁾、
島田 憲次²⁾、福澤 正洋¹⁾

総排泄腔外反症は稀な直腸肛門奇形の一つであるが、中でも covered cloacal exstrophy (以下 CCE) の発生は稀である。

【症例】 2カ月の女児。在胎35週3日に1,940g, Apgar8/9点で出生した。会陰部の径約5mmの排泄孔より水様便及び尿の排出を認め、総排泄腔が疑われたため当院へ紹介となった。身体所見で恥骨離開を認め、排泄孔周囲の皮膚は糜爛を呈していた。造影検査では総排泄腔に連続した小腸と後腸が造影された。恥骨離開を有するものの臓器の外反を認めず、尿生殖洞および後腸形成不全を伴う CCE と診断し、膀胱腸裂分離術および後腸瘻造設術を施行した。術後、排尿と排便の分離により電解質異常や皮膚の糜爛は改善した。

【まとめ】 CCE は本邦での発生は稀で、腹壁や会陰の外観から異常が分かりにくいため診断に苦慮することが多い。排尿及び排便を共に認める排泄孔に加えて恥骨離開を認めた場合、本症を念頭に精査を行い適切に治療を選択することが重要である。

1-4 腹腔鏡補助下に直腸のみの pull-through を施行した 総排泄腔遺残症の1例

- 1) 独立行政法人国立病院機構岡山医療センター、
2) NPO 法人中国四国小児外科医療支援機構

○中原 康雄¹⁾²⁾、後藤 隆文¹⁾²⁾、
片山 修一¹⁾²⁾、豊岡 晃輔¹⁾²⁾、
大徳 芳江¹⁾²⁾、青山 興司¹⁾²⁾

高位の総排泄腔遺残症に対し、一次的に直腸、膈を形成してしまうことの是非に関しては依然意見の分かれるところである。今回腹腔鏡補助下に直腸のみの pull-through 術を施行した高位の総排泄腔遺残症を報告する。

【症例】 1歳、女児。食道閉鎖症、頸部リンパ管奇形、橈骨欠損、右腎欠損、左水腎水尿管などの合併奇形あり。膀胱鏡所見では共通管は3cm強、三管合流部は膀胱頸部付近、左尿管は膀胱内ではあるが膀胱頸部近くに異所開口していた。腹腔鏡補助下に直腸を pull-through した。手術時の所見では左の hemivagina は小さく、右側は卵巣は存在していたが子宮、膈は欠損していた。術後経過は良好であり、腎機能、排尿機能の障害もない。

高位の総排泄腔遺残症に対し乳幼児期に膀胱機能を全く障害することなく十分な膈を形成することは困難である。本症例のような場合は乳幼児期には直腸のみの治療にとどめ思春期に造膈を行うことは合理的な治療戦略と考えられた。

2-1 肛門皮膚瘻と鑑別を要した 肛門狭窄症の一例

千葉大学大学院医学研究院

- 中田 光政、齋藤 武、照井 慶太、
光永 哲也、大野 幸恵、三瀬 直子、
小原 由紀子、柴田 涼平、笈田 論、
川口 雄之亮、勝俣 善夫、吉澤 比呂子、
吉田 英生

症例は9ヵ月男児。肛門位置異常にて受診となった。外肛門括約筋の発達をよく、外肛門括約筋腹側前縁に瘻孔が開いている外観であった。第5指は挿入不可能で、注腸造影では瘻孔の距離は短く、わずかに0時方向にずれて瘻孔開口した肛門皮膚瘻と考えられた。しかし、外肛門括約筋が正常に近い発達であり、筋電図では0時方向の外肛門括約筋の収縮も認めため、肛門狭窄症を鑑別として手術の方針となった。肛門を開口すると2時から10時にかけて背側方向に膜様狭窄を認め、肛門狭窄症の診断となった。手術は膜切除を施行し、術後経過は良好である。本症例では6時方向を中心とした膜様狭窄のため、肛門開口部がわずかに前方にずれた様に見えたと考えられた。

肛門狭窄症は直腸肛門奇形研究会の報告では1975～2005年の2,829例中0.9%と登録は少なく、過去でも症例報告は少ないが、日常診療で遭遇しやすい病態であると思われ、文献的考察を加えて報告する。

2-2 乳児期に排便困難を呈して 発見された anorectal stenosis の3例

福岡大学 呼吸器・乳腺内分泌・小児外科

- 廣瀬 龍一郎、甲斐 裕樹、音田 泰裕、
岩崎 昭憲

anorectal stenosis は稀な病型で Stephens & Smith の分類では中間位に分類されるが、狭窄部の長さによって高位から低位までのタイプが報告され、治療方針も異なる。我々は乳児期に排便困難を呈して発見された3女児例を経験したので報告する。

全例で臨床像が酷似しており、離乳食開始を契機に排便困難が出現して肛門狭窄に気づかれた(7か月、8か月、13か月)。外観上しわがない肛門窩内に瘻孔が開き、歯状線の構造を認めなかった。注腸造影にて2～3cm長の狭窄部と便塊の貯留した megarectum を認めた。ヘガールブジーを用いた摘便にて宿便を除去した後、会陰的に瘻孔をくりぬくように剥離して直腸下端に到達し、周囲筋群を確認しながらプルスルーして肛門形成した。術後は速やかに排便困難が消失した。

自験3例は直腸下端の位置が恥骨直腸筋の下縁付近にあり瘻孔の走行が正常肛門管と変わらない肛門管狭窄と考え、会陰式アプローチを選択し良好な結果が得られた。

2-3 人工肛門を造設した直腸閉鎖の1例

京都府立医科大学 小児外科

- 青井 重善、樋口 恒司、高山 勝平、
坂井 宏平、東 真弓、文野 誠久、
古川 泰三、木村 修、田尻 達郎

【はじめに】直腸閉鎖（以下本症）は全直腸肛門奇形の約1%と稀である。当院において診断治療を行った本症の1例を報告する。

【症例】生後2日の男児。38週、2,364gで出生。両大血管右室起始症の診断でPGE1が開始された。正常外観の肛門を有し検温も可能であったため哺乳を開始したが、嘔吐と腹部膨満が出現し、排便も認めず当科紹介となった。注腸造影で本症と診断したが閉鎖部の状況が不明であり横行結腸に人工肛門を造設した。生後10ヵ月時に根治術を施行した。術前の透視で、肛門からの距離約2cm、厚さ約0.4mmの膜様閉鎖と判断し経肛門的に膜様部切除を行った。生後11ヵ月時に人工肛門閉鎖を行い排便状況は極めて良好である。

【考察】本症の治療は、一次的根治術と人工肛門造設後の二次的根治術に大別され、また閉鎖部の長さで術式が異なる。術式選択には正確な診断が必要であり不明な場合は人工肛門造設を選択すべきと考えられた。

2-4 直腸閉鎖症の1例

国立成育医療研究センター

- 前田 健一、渡邊 稔彦、竹添 豊志子、
右田 美里、高橋 正貴、大野 通暢、
佐藤 かおり、瀧本 康史、金森 豊

直腸閉鎖症は稀な直腸肛門奇形で、閉鎖の部位・形態も多様で治療法は各症例に適した選択が重要となる。今回我々は、術前に膜様閉鎖症と診断し、低侵襲な経肛門的根治術を施行しえたため、報告する。

患児は在胎41週1日、2,960gで出生した女児で、胎便排泄遅延、腹部膨満、嘔吐のため、日齢1に精査加療目的に当院へ転院となった。外観上の肛門位置・形状は正常であった。注腸検査のためカテーテルを肛門より挿入したところ、肛門縁より15～20mmの部位で抵抗を認め、造影剤を注入しても直腸は造影されず直腸膜様閉鎖症と診断した。注腸検査・超音波検査より膜の厚さは約3mmと診断した。同日、全身麻酔下に経肛門的膜様部切開術を施行した。手術所見では、膜は歯状線より5mm口側に存在しており、膜を縦切開すると、ガス・胎便の排泄を認めた。全周性に5-0PDSで縫合し、手術終了した。術後経過は良好で、術後1日目より哺乳開始、術後16日目に退院となった。

2-5 排便回数増加と肛門周囲膿瘍で発見された、直腸膜様狭窄の1乳児例

国立成育医療研究センター 外科

- 竹添 豊志子、高橋 正貴、右田 美里、前田 健一、大野 通暢、渡邊 稔彦、瀧本 康史、金森 豊

症例は6ヵ月女児、周産期歴・発育歴に異常の指摘はなかった。月齢4より排便回数が増加(1日7-8回)し、肛門周囲膿瘍を反復するため、当院を受診した。直腸指診により、肛門縁から1横指程度口側に全周性の狭窄を認めた。MRIでは脊椎の異常は認めず、直腸狭窄の診断で月齢11に手術を施行した。手術直前に施行した大腸内視鏡検査では肛門縁より約2cm口側の部位に、全周性の膜様狭窄を認めた。経肛門的に直腸後壁の膜様狭窄部を切除し、粘膜を修復し手術を終了した。術後狭窄部は開大し、術後5ヶ月後の現在は排便回数は1日2-3回に減少し経過は良好である。

直腸肛門奇形は小児外科分野における代表的な疾患のひとつであるが、正常肛門を有する病型のうち rectal stenosis はまれな疾患とされている。若干の文献的考察を加えて症例を報告する。

2-6 直腸-背部膿瘍を形成した Currarino 症候群の1例

慶應義塾大学 小児外科

- 藤村 匠、藤野 明浩、阿部 陽友、高橋 信博、清水 隆弘、石濱 秀雄、加藤 源俊、山田 洋平、星野 健、黒田 達夫

2歳4ヶ月女児、出生時より腹部膨満があり、便秘として経過観察されていた。保存的加療では症状改善せず、精査施行。直腸狭窄、仙骨欠損、仙骨前腫瘍を認め、Currarino 症候群と診断された。歩行困難、下肢筋力低下も認め、Th4以下の脊髄腫瘍とその出血による症状と判断し、はじめに当院整形外科で髄内腫瘍摘出術、稽留解除、硬膜形成を施行し、直腸狭窄はブジーで管理していた。術半年、術創部皮下膿瘍を形成。抗生剤、ドレナージで一時改善したが、1か月後に同部に再び膿瘍を形成した。この際の消化管造影で初めて直腸-膿瘍腔の瘻孔形成を認めた。瘻孔の増悪を防ぐために横行結腸に人工肛門を造設し、瘻孔は消失した。外科的介入の組み立てとタイミングの決定に難渋し、また、瘻孔形成の原因も悩ましく、示唆に富む症例と思われるので報告する。

3-1 高位鎖肛を合併した caudal regression syndrome の1例

1) 田附興風会医学研究所 北野病院 小児外科、
2) 同 小児科

○林 宏昭¹⁾、佐藤 正人¹⁾、服部 健吾¹⁾、
橘木 由美子¹⁾、山下 純英²⁾、水本 洋²⁾

症例は日齢0男児。在胎41週3日、3,800gで出生。下肢低形成認め、精査加療目的に当院紹介となった。外観上肛門狭窄があり、ブジーにて胎便が排出された。また画像検査にて仙骨無形成、腰椎および骨盤低形成であることが判明し、caudal regression syndromeと診断した。肛門狭窄に関してはブジーにて排便は得られていたが腹部膨満は持続した。瘻孔造影を施行したところ、瘻孔長が6cmと長く、高位鎖肛と診断し、人工肛門造設術を施行した。現在外来経過観察中である。

鎖肛の国際病型分類において、肛門窩に瘻孔を有する高位鎖肛はない。児においては恥骨および尾骨、腸骨が欠損しており、正確な診断は困難である。本児は分類不能型となるのか？また本児において歩行障害、膀胱直腸障害はほぼ必発と考えられるが、本児において肛門形成術の適応があるのかどうかご教授いただきたい。

3-2 初診時に8歳であった低位鎖肛(肛門皮膚瘻)の1例

愛染橋病院 外科 小児外科

○田中 夏美、北山 保博、松尾 吉庸

【症例】8歳、女児。

【主訴】便失禁。

【現病歴】生後鎖肛を指摘され前医で経過観察をされていたが1歳時に外来通院を中断した。その後医療機関にかかることなく経過していたが、便が緩めの時や体育の授業中に便失禁をきたすことがあり当科を受診した。

【画像所見】瘻孔造影では直腸および結腸の拡張は認めなかった。

【手術所見】anterior sagittal anorectoplastyを行う方針とした。瘻孔開口部に環状切開を加え、正中線上を外肛門括約筋の収縮中心まで後方に延長し逆Y字に皮膚切開を加えた。瘻孔および直腸壁を通常通り周囲組織より剥離した。外肛門括約筋を切開せずに中心に引き降ろす方針とし、外肛門括約筋の中心にモスキート鉗子を鈍的に通し十分拡張したのちに直腸を中心に引きおろした。筋群の再縫合や直腸皮膚縫合は通常通り行った。

【術後経過】術後経過は良好であった。術後1ヶ月の現在排便機能は良好である。

3-3 巨大肛門ポリープを伴った 女兒低位鎖肛の1例

徳島大学病院 小児外科・小児内視鏡外科

○石橋 広樹、矢田 圭吾、森 大樹、
島田 光生

今回、生下時から肛門縁に付着する有茎性のポリープに、低位鎖肛と括約筋分布異常を合併する非常に稀な症例を経験したので報告する。

症例は4ヶ月、女兒。生下時から肛門縁に付着する有茎性で正常皮膚で覆われた3cm大のポリープを認めた。会陰部は perineal groove 様で排便のある孔はやや正中前方で、anterior anus (直腸皮膚瘻)と思われた。そのやや背側5時方向にポリープが付着していた。さらに瘻孔の左側(3時方向)に肛門窩様の陥凹があり、括約筋様に収縮を認めた。生後4ヶ月時に肛門ポリープを切除した。病理ではポリープは hamartoma 様で、最終診断は Nevus lipomatosus cutaneus superficialis であった。この手術時に筋刺激装置を用いて括約筋の刺激を確認したが、瘻孔周囲の収縮は非常に弱く、肛門窩様の陥凹部で強い収縮を認めた。現在、直腸肛門形成術の術式を検討中である。

3-4 女兒の anovestibular/anovulvar fistula に Cut Back 手術を 施行した3例の経験

新潟県立中央病院 小児外科

○奥山 直樹

女兒低位鎖肛(anovestibular/anovulvar fistula)に対して anal transplantation (Potts 手術)が広く行われている。最近5年間に瘻孔が細く Potts 手術時期まで排便管理が困難であった症例2例と積極的に本術式を選択した1例に対して Cut Back 手術を施行した。病型は anovestibular fistula が1例、anovulvar fistula が2例であった。

術後3ヶ月の1例は現在 GE および Bougie を施行しており、他2例は GE や緩下剤の投与が不要であり Bougie のみ継続している。3例とも尿路感染や膣炎の既往はない。Cut Back 手術を選択した1例は両親が満足しているが、緊急避難的に施行した2例は両親が cosmetic な追加手術を希望している。

女兒低位鎖肛(anovestibular/anovulvar fistula)に対して Cut Back 手術は根治手術として機能的には必要十分な治療効果があると思われるが、一方、Cut Back 手術を根治手術と位置づける場合には cosmetic な視点からも術前に両親へ十分な説明が必要である。