症例

肛門弛緩不全，直腸瘤および会陰下垂を伴った 直腸肛門奇形（低位病型）術後の1例

日本大学第1外科¹⁾，日本歯科大学外科²⁾

池田 太郎¹⁾ 富田 涼一^{1),2)} 萩原 紀嗣¹⁾
五十嵐 誠悟¹⁾ 越永 従道¹⁾ 福澤 正洋¹⁾

A Case of Anismus, Rectocele and Perineal Descent in Postoperative Anorectal Malformation—Case Report—

Taro IKEDA¹⁾, Ryouichi TOMITA¹⁾²⁾, Noritsugu HAGIWARA¹⁾,
Seigo IGARASHI¹⁾, Tsugumichi KOSHINAGA¹⁾ and Masahiro FUKUZAWA¹⁾

First Department of surgery, Nihon University school of Medicine¹⁾

Department of surgery, The Nippon Dental University²⁾

症例は48歳，女性。出生時に直腸肛門奇形と診断され，7歳時に人工肛門造設術を施行された。その後27歳時に当院初診し，肛門腔前庭部瘻の診断下に肛門移動術（Potts法）が施行された。排便機能は，臨床的評価法で4点（Fair）で，失禁・汚染は下痢時のみで，ガスと便の識別は不可能で排便感覚はなく，下剤による排便コントロールをしている。直腸肛門内圧検査では，内外括約筋機能・直腸感覚・直腸貯留能の低下を認め，肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査では，肛門管上・中・下部ともに感覚閾値の低下を認めた。また，排便注腸造影検査（ディフェコグラフィー）では，肛門弛緩不全と直腸瘤を認めた。

したがって，直腸肛門奇形術後排便障害では，直腸肛門内圧検査の他に，肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査や排便注腸造影検査を加え，その原因を評価すべきである。

索引用語：直腸肛門奇形（Anorectal malformation），排便注腸造影検査（Defecography），肛門管粘膜電流感覚閾値（Anal mucosal electric sensitivity）

はじめに

直腸肛門奇形の治療は，患児の救命のみならず，より正常な排便機能を与えることにある。その手術方針としては，肛門挙筋群と肛門括約筋の重要性を考慮した術式を選択するようになってから，術後排便機能に関してのQuality of life（QOL）は向上しつつある^{1)~5)}。しかしながら，未だに高位・中間位病型をはじめ，低位病型の術後症例の中にも，様々な原因で術後排便機能が不良のものも存在する。

今回われわれは直腸肛門奇形（低位病型）術後に肛門管粘膜電流感覚閾値の低下，肛門弛緩不全，直腸瘤及び会陰下垂を伴い排便障害を呈した成人の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：48歳，女性。

主 訴：下痢時の失禁・汚染，排便感覚の欠如。

既往歴：生下時に直腸肛門奇形と診断。7歳時に人工肛門造設術施行。

家族歴：特記すべきことなし。

Table 1 Clinical evaluation of postoperative anorectal function and Objective evaluation of postoperative anorectal function (the Japanese Study Group of Anorectal Anomalies: JSGA)

Defecation desire		Incontinence	
- No desire.	0	- Daily incontinence.	0
- Always feel like defecating.	2	- At least twice a week.	1
- Other than the above.	1	- Incontinent only when there is diarrhea.	3
		- Absent.	4
		- Other than the above.	2

Constipation		Soiling	
- Cleaning enema and stool extraction required.	1	- Daily soiling.	0
- Daily enema and suppository required.	2	- Absent.	2
- Absent.	4	- Other than the above.	1
- Other than the above.	3		

Essential points for entry

This evaluation method applies only to cases aged 4 years or older. A ranking is assigned based on the sum of the scores of all items, with the exception of constipation and incontinence for which only lower scores are included in the total.

Score: 7.8P good
4.6P fair
0.3P poor

Contrast enema	1. Rectal enlargement	Less than 60% enlargement	1
		At least 60% enlargement	0
	2. Rectoperineal flexure	Good	2
		Fair	1
		Poor	0
	3. Contrast medium leakage	Yes	1
		No	0
Measurement of internal pressure	4. Anal canal maximum pressure	At least 40 cmH ₂ O	2
		20-40 cmH ₂ O	1
		Less than 20 cmH ₂ O	0
	5. Rectoanal reflex	Typical positive	2
		Atypical positive	1
		Negative	0

(1) Rate of rectal enlargement = $\frac{\text{Transverse diameter of the rectum above the same line}}{\text{Transverse diameter of minor pelvis}} \times 100$

(2) Rectoperineal flexure:

"Good" means normal or near normal, and "poor" means there being hardly any perineal flexure.

(3) Rectoanal reflex:

"Typical positive" is based on the positive evaluation criteria of the Research Center for Pediatric Alimentary Tract Function.

Score: 7.8P good
4.6P fair
0.3P poor

Fig. 1 Defecographic findings

現病歴：27歳時に当院初診し、肛門隆前庭部瘻の診断にて昭和53年6月9日に肛門移動術(Potts法)を施行した。術後外来にてブジーによる肛門拡張を施行し、昭和53年11月30日には人工肛門閉鎖術を施行した。術後経過は良好で、狭窄および直腸粘膜脱等は認めなかった。術後の排便機能は、失禁・汚染は下痢時のみと軽度であったが、排便感覚は全くなく、下剤により排便コントロールをしていた。

局所所見及び排便評価：肛門指診では、肛門管のトーンスの低下を認めたが、狭窄および直腸粘膜脱等は認めなかった。排便状態は、排便感覚はなく、失禁・汚染は下痢時のみと軽度であり、直

腸肛門奇形研究会の臨床的評価法⁷⁾では4点とFairであった。また、直腸肛門奇形研究会の客観的評価法⁸⁾では5点であり、臨床的評価法と同様、Fairであった (Table 1)。

血液・生化学・尿一般検査：特記すべき異常所見なし。

直腸肛門内圧検査：肛門管長は4cmであった。肛門管最大静止圧は18mmHg、肛門管最大収縮圧は44mmHgであり、内・外肛門括約筋の機能低下を認めたが、直腸肛門反射は定型的であった。最小知覚は30mlと直腸感覚能の低下を認めた。最小耐容量は70ml、最大耐容量は180mlで良好であったが、直腸コンプライアンスは2.5ml/mmHgとやや低下を認める程度であった。

肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査：肛門管上部では25.0mA、肛門管中部では15.2mA、肛門管下部では5.2mAと肛門管上・中部・下部ともに基準値の3mA以下と比較して感覚閾値の低下を、とくに肛門管上・中部において著しい低下を認めた。

排便注腸造影検査(ディフェコグラフィー)：安静時92度、肛門収縮時96度、怒責時93度で、肛門弛緩不全を認め、また会陰下垂は安静時6.7cm、怒責時7.3cmと著明であった。また、直腸瘤も認めた (Fig. 1)。

考 察

直腸肛門奇形において低位病型では，術後排便異常を呈することは高位病型に比し少ないが，これは直腸盲端が排便機能に重要な恥骨直腸筋係蹄を貫通しており，しかも外肛門括約筋の発達も比較的良好であるためと言われている。したがって，中・高位病型に対しては，直腸を恥骨直腸筋と内外肛門括約筋を貫通させる術式が，選択されるようになってから術後の排便機能は良好となってきた^{1)~6)}。また，術後排便機能については，患児の加齢とともに改善傾向があるといわれている^{9)~11)}。しかし，術後長期間経過した症例においても便秘や便失禁・汚染などを呈する症例も存在する。それらの原因としては，術後肛門狭窄や直腸粘膜脱，外肛門括約筋の肛門管後方への偏在などがあげられる⁹⁾。また，これらのことで説明できない症例では小児期の排便障害による精神的影響が大きく関与しているとされてきた^{11),12)}。

しかし，以上の事柄でも説明できない排便異常を訴える症例も少なからず存在する事も事実である。そこで，われわれは最近経験した成人期直腸肛門奇形術後症例において，これまでの直腸肛門内圧検査に，新たに肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査，ディフェコグラフィーを行い，排便機能の評価を試みた。

本症例の排便感覚能において，直腸肛門内圧検査では直腸感覚の低下を認めた。しかし，肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査を行うことで，さらに肛門管粘膜感覚の低下に伴う排便感覚の消失が判明した。さらにディフェコグラフィーにより肛門管弛緩不全，直腸瘤，会陰下垂を確認した。すなわち，排便感覚の消失と直腸肛門の形態的・機能的異常（直腸瘤，肛門弛緩不全，会陰下垂）による排便障害は，いきみ排便を繰り返すこととなり，直腸肛門排便機構に悪影響を来とし，排便障害をさらに増悪させ，悪循環を来したものと思われる^{13)~16)}。また，本症例に関しては，排便習慣を獲得する小児期に全く自然肛門が使われず，瘻孔排便を生後より7年間，そしてその後に肛門移動術が行われる27歳までの20年間を人工肛門による排便で管理された事も排便機能に悪影響したと考え

られた。

直腸肛門奇形の術後排便異常に対しては，腹部単純レントゲン検査，注腸造影検査，直腸肛門内圧検査，骨盤CT検査，MRI検査等で評価されてきた。しかし，これら肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査やディフェコグラフィーなどを加えることで，排便障害の原因となる疾患の検索の幅が広がり，直腸肛門奇形特有の解剖学的な異常以外の排便障害の検索に対しても有用であると考えられた^{13)~16)}。また最近では，直腸肛門奇形の術後排便異常に対して手術療法^{5),17)}やバイオフィードバック療法などの治療により改善が見られるとの報告¹⁸⁾がされており，直腸肛門の形態的・機能的異常，とくに肛門弛緩不全，恥骨直腸筋症候群などのanismusによる排便障害は，バイオフィードバック療法が有効とされている^{13)~16)}。

以上，術後排便異常に対しては積極的に原因を精査すべきであり，肛門管粘膜電流感覚閾値測定検査やディフェコグラフィーは，有用な検査法であると考えられた。

おわりに

直腸肛門奇形（低位病型）術後に肛門管粘膜感覚能の低下，肛門弛緩不全，直腸瘤および会陰下垂を伴い排便障害を呈した成人の1例を経験したので報告した。

直腸肛門奇形術後排便障害に対して，これまでの一般的な注腸検査や直腸肛門内圧検査の他にディフェコグラフィーや肛門管粘膜電流感覚閾値検査を加えることで，排便障害の原因として，肛門管粘膜感覚能の低下，肛門管弛緩不全，直腸瘤，会陰下垂なども考慮に入れるべきと考えており，今後，症例を重ね検討していくつもりである。

本文の要旨は第24回日本外科系連合会学術集会（神戸）において発表した。

参考文献

- 1) Stephens FD, Smith ED: Operative management of rectal deformities, in Anorectal malformations in Children, Year Book Publishers, Chicago, 1971, p298-357
- 2) Pena A, de Vries PA: Posterior sagittal anor-

- ectoplasty: Important technical considerations and new applications. *J Pediatr Surg* 17: 796-811, 1982
- 3) 岡部郁夫, 森田 建, 嶋崎陽一他: 高位鎖肛に対する腹会陰式肛門形成術(日大術式)と術後排便機能. *小児外科*22: 541-549, 1990
- 4) 辻 尚人, Horacio T, 吾妻達生他: Posterior sagittal anorectoplastyによる直腸肛門奇形根治術後の排便機能. *日小外会誌*30: 229-235, 1994
- 5) 高松英夫, 野口啓幸, 田原博幸他: 直腸肛門奇形術後排便障害例の治療経験. *日小児外会誌*30: 878-885, 1994
- 6) 新保和弘: 直腸肛門奇形術後症例の肛門挙筋, 肛門括約筋の発達程度と排便機能の關係の評価. *日小児外会誌*30: 711-717, 1994
- 7) 直腸肛門奇形研究会: 直腸肛門奇形術後排便機能の臨床的評価法試案. *日小児外会誌*18: 1458-1459, 1982
- 8) 直腸肛門奇形研究会: 排便機能の客觀的評価法について. 第31回直腸肛門奇形研究会, 1983年7月(東京)
- 9) 広部誠一, 林 隼, 鎌形正一郎他: 直腸肛門奇形における排便機能の長期経時的変化の検討. *日小児外会誌*33: 455, 1997
- 10) 窪田正幸, 水田祥代, 生野 猛他: 術後12年以上経過した直腸肛門奇形症例の排便機能の検討. *日小児外会誌*33: 455, 1997
- 11) 駿河敬治郎, 角田 晋, 大谷俊樹他: 術後排便障害の長期フォローアップ. *小児外科*30: 49-53, 1998
- 12) Diseth TH, Emblem R: Somatic function, mental health, and psychosocial adjustment of adolescents with anorectal anomalies. *J Pediatr Surg*, 31: 638-643, 1996
- 13) 富田涼一: 形態的・機能的異常を伴う直腸肛門疾患. *Medical Postgraduates* 35: 68-72, 1997
- 14) 富田涼一, 五十嵐誠悟, 萩原紀嗣他: 直腸肛門の形態学的・機能的異常疾患の診断—特にDefecographyによる—. *日外科系連会誌*23: 653-657, 1998
- 15) 富田涼一, 五十嵐誠悟, 萩原紀嗣他: 排便障害の有無からみたRectoceleの検討. *日外科系連会誌* 23: 937-941, 1998
- 16) 富田涼一, 五十嵐誠悟, 阿部義藏他: 自然肛門温存術後における各種直腸肛門機能検査の意義. *日本大腸肛門病会誌*49: 723, 1996
- 17) 内山昌則, 岩淵 眞, 大沢義弘他: 鎖肛修復術後, 直腸粘膜脱の機序としての手術術式についての検討. *日小児外会誌*25: 787-791, 1989
- 18) 大浜和憲, 河野美幸, 南部 澄他: 直腸肛門奇形術後排便機能評価と成績—特にBiofeedback排便訓練法の効果について—. *小児外科*15: 465-472, 1983