症例報告

食道粘膜下血腫により胎児仮死とショックを来した 食道アカラシア合併妊婦の1例

東京慈恵会医科大学外科学講座消化器外科

谷島雄一郎 柏木 秀幸 西川 勝則 佐々木敏行
松本 晶 矢野 文章 小村 伸朗 矢永 勝彦

症例は32歳の初回妊娠の女性で、妊娠26週0日で吐血を主訴に近医を受診し、経過観察目的で入院していた。26週2日に貧血の進行と持続する吐血のため当院に搬送となった。来院時の胸腹部CTと上部消化管内視鏡検査では下部食道の屈曲とその口側の著明な拡張を認め、食道内腔には多量の血液貯留を認めた。母体はショック状態であり、胎児仮死も来していたため、即座に緊急手術となった。帝王切開・噴門形成・胃瘻造設術を施行。分娩児は917gでapgar-score 4点の男子。食道アカラシアはsigmoid typeで、嘔吐を契機として広汎な粘膜下血腫を来し、その破綻により高度な貧血を来したものと考えられた。術後は母子ともに経過良好で、母体は術後18日目に退院、児は103日の入院管理後退院となった。文献的考察を含めて報告する。

はじめに

食道アカラシアは10万人に約1人の発症頻度とされ、20~60歳代が好発年齢とされている¹⁾²⁾。今回、我々は食道アカラシアに伴う広範な粘膜下血腫による貧血のため母子胎児ともにショックとなったものの、緊急手術により母児ともに救命しえた1例を経験したので、文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：32歳 女性

主訴：吐血

既往歴：25歳時、食道アカラシアと診断された。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：25歳時の職場の検診胸部単純X線写真で異常を指摘された。上部消化管内視鏡検査(esophagogastroduodenoscopy；以下、EGDと略記)および上部消化管造影検査で、食道アカラシアと診断された。当時は軽度の嚥下障害を自覚していた。その後は症状の悪化もなく放置していた。

30歳で結婚、32歳で初妊娠し、妊娠経過に母子ともに異常はなく、悪阻の自覚症状もまったくなかった。平成20年12月(妊娠25週)、午前から嘔気を感じ、午後に数回の嘔吐あり。夕方になって嘔吐物に血液が混入したため、近医救急外来を受診した。産婦人科入院となり、絶飲食で経過観察されていた。翌日、急激な貧血の進行を認め、吐血の原因究明のためEGDを施行したところ、食道入口部から凝血塊が充満しており内腔の確認が不可能で出血源は不明であった。母子ともにショック状態に陥ったため、当院へ搬送となった。

入院時現症：身長164cm、体重57kg、血圧100/72mmHg、意識レベルJCS-1、顔色は蒼白、腹部は妊娠による膨隆あり。前頸部に皮下気腫を疑う握雪感あり。

血液検査所見：WBC 18,500/mm³、Hb 7.0g/dl(赤血球輸血4単位投与後)、Plt 15.0×10⁴/mm³、CRP 陰性

胸腹部CT：頸部食道から胸部下部食道にかけての著明な拡張を認め、その内腔に血液貯留と粘膜下血腫(70mm×210mm)を認めた。また、胸部下部から腹部食道にかけての屈曲を認めた(Fig. 1)。

<2010年6月9日受理>別刷請求先：谷島雄一郎
〒105-8461 港区西新橋3-25-8 東京慈恵会医科大学外科学講座消化器外科

Fig. 1 Chest CT demonstrated dilation of the upper esophagus due to achalasia and huge submucosal hematoma of the esophagus as well as tortuosity of the lower esophagus.

胎児 non-stress test : Sinusoidal pattern (胎児重症貧血を疑う所見)

以上の所見から、母体は食道アカラシアに伴う血腫による高度貧血によるショック状態、胎児仮死と診断し、母体の救命を第一優先として緊急手術の適応とした。

手術所見：まず、当院産婦人科医師により帝王切開術を施行した。下腹部正中切開で開腹し、腹腔内には出血なし。胎児を娩出した。25週2日、33.6cm、917gの男児で apgar-score1 分値4点、5分値6点であった。児は小児科医により即座に NICU 管理となった。次に上腹部正中切開で開腹した。食道裂孔を開き、縦隔を露出したところ、食道は高度に拡張蛇行しており、さらに下部食道噴門部が開大していないことから、sigmoid type の食道アカラシアに一致する所見と判断された。さらに、下縦隔を観察し縦隔穿破がないことも確認した。術中 EGD を施行したが、前述の所見と同様であった (Fig. 2)。食道内停滞の解除を目的として、アカラシアに対して経腹的に Heller 筋層切

開術と Dor 噴門形成術を行った (Fig. 3)。また、術後に胃が縦隔内へ移動することを予防する胃壁固定のためと術後の胃内容を把握するため、さらには術後早期の経腸栄養を目的として、胃体上部前壁に胃瘻を造設した。術前 CT と EGD で頸部食道までの広範な拡張ならびに粘膜下血腫を認め、前頸部に皮下気腫を疑う所見を認めたため、左頸部襟状切開を加え、頸部から胸部上部食道の外膜の色調変化がないことで全層性の壊死なきことを確認した。手術時間 237 分、出血量 2,350ml であった。

術後経過：母体は術後3日間の ICU 管理を要した。吐血なく胃瘻からの血性排液を認めなかった。術後6日目より胃瘻を使用した経腸栄養を開始した。術後9日目に EGD で食道内の粘膜下血腫が消失したことを確認後、術後10日目より経口摂取を開始した。術後18日目に自宅退院となった。術後3か月の食道造影では、食道の拡張と屈曲の改善を認めた (Fig. 4)。男児は出産予定日までの 108 日の入院管理を必要としたが、合併症の

Fig. 2 Endoscopic examination shows a huge esophageal hematoma and blood clots within the esophageal lumen.

Fig. 3 Emergency laparotomy revealed a narrow segment and tortuosity of the lower esophagus.

出現はなかった。

考 察

食道アカラシアは、10万人に1人の発症頻度とされるまれな疾患で、20～60歳代が好発年齢であり、男性よりも女性のほうがわずかに多いとされている。食道アカラシアは Auerbach 神経叢の変性や消失により下部食道括約筋の弛緩不全による食物の通過障害や食道の異常拡張を来す機能的疾患であるとされているが、詳細な病因はいまだ明確でない³⁾。

食道粘膜下血腫も比較的まれな病態であり、1957年に Williams⁴⁾らが食道粘膜下に認めた血腫

Fig. 4 Three months after the operation, the dilation and tortuosity of the esophagus have improved.

について、はじめて特発性粘膜剥離として報告されている。本邦では古川ら⁵⁾の分類では食道損傷を機械的損傷と特発性損傷に分け、特発性を特発性食道破裂 (Boerhaave 症候群)・マロリーワイス症候群そして特発性食道粘膜下血腫の三つに分類された中の1病態とされている。病因としては、何らかの原因による食道内圧の急激な上昇による食道壁の損傷とされ、その損傷の主体は粘膜下層にあることが多い。そのため筋層から外膜、ならびに粘膜面は比較的保たれていることが多い。

本邦において、妊婦が食道アカラシアによって粘膜下血腫を来した症例の報告は、医学中央雑誌で1983年から2009年まで「食道アカラシア」、「妊婦」、「粘膜下血腫」をキーワードとして検索したところ、鈴木ら⁶⁾による1例のみであった。

本症例では妊娠中に腹圧が上昇することと嘔気嘔吐によって食道内圧が上昇し、拡張によって緋薄化していた粘膜下層が損傷して食道粘膜下血腫が形成され、その破綻により食道内腔に多量の出血を来していた。通常であれば食道粘膜下血腫は保存的に改善する病態であるが、妊娠によって腹圧が恒常的に上昇しており、それによって自然止血を得られずに高度貧血を来すまで出血が持続し

たものと考えられる。

手術の目的は母体の安全確保であり、帝王切開術のみで手術を終了することも選択可能であった。しかしながら、sigmoid type grade III の重度アカラシア症例であり、術前に頸部に皮下気腫を疑わせる所見も認めたため、食道全層損傷の危険性を考慮して頸部から胸部食道の明らかな穿破がないことを確認した。皮下気腫の原因はEGDによる梨状窩損傷、肉眼的に指摘できないもしくは術野で検索できなかった頸部や胸部食道に小さな穿孔があったことも否定できなかったものの、術後早期に皮下気腫は消失した。通過障害を解除して食道内圧を下げて粘膜下血腫の悪化を防止すべく筋層切開術を同時に施行した。ボタン型胃瘻を造設し、そこからシリコンチューブを胃内に留置して出血をモニターした。粘膜下血腫部分に手術操作は加えなかったものの術後に止血をえられたことより、帝王切開で胎児を娩出し腹腔内圧を低下させたことと、筋層切開術によって食道内圧の上昇を回避できたことによるものと考えられる。

妊娠中はいわゆる悪阻による悪心嘔吐が出現することはまれではない。しかしながら、その症状が強い場合は他の疾患の存在に注意すべきである。食道アカラシアは妊娠中の嘔吐の原因となる可能性は少ないものの、好発年齢を考慮すると鑑別疾患に入れるべきものと考え、今回の症例のように食道アカラシアが原因で食道拡張を来した場合、嘔吐を契機として緋薄化して脆弱になった粘膜下層が損傷し粘膜下血腫を来すことはむしろまれではないと考える。

1932年にRoques⁷⁾が妊娠により増悪した食道アカラシアを報告している。近年では欧米から、妊婦の食道アカラシア患者に対しても、腹腔鏡下手術やバルーン拡張を行うとの報告が散見される^{8)~12)}。

我々はこれまでに食道アカラシアに対して腹腔鏡下 Heller-Dor 手術を 200 例以上に施行し、良好

な結果を得ている¹³⁾。そのうち若い女性患者 2 名が、術後に無事に妊娠出産をした経験を有する。そのため、食道アカラシアの診断がついた妊娠可能年齢の女性に対しては、積極的に腹腔鏡下手術を薦めている。

文 献

- 1) Mayberry JF : Epidemiology and demographics of achalasia. *Gastrointest Endosc Clin N Am* **11** : 235—248, 2001
- 2) Podas T, Eaden J, Mayberry M et al : Achalasia : a critical review of epidemiological studies. *Am J Gastroenterol* **93** : 2345—2357, 1998
- 3) 食道疾患研究会編 : 食道アカラシア取扱い規約、第 3 版。金原出版、東京、1983
- 4) Williams B : Case report : oesophageal laceration following remote trauma. *Br J Radiol* **30** : 666—668, 1957
- 5) 古川敬芳、高安賢一、牛尾恭輔 : 食道壁内血腫。別冊日本臨床 領域別症候群 5 消化管症候群上巻。日本臨牀社、大阪、1994、p163—165
- 6) 鈴木秀文、加藤淑子、岩崎武輝ほか : 食道アカラシアに伴う消化管出血のため Fetal distress をきたした 1 例。産婦の進歩 **45** : 223—225, 1993
- 7) Roque F : Pregnancy associated with cardiospasm. *J Obstet Gynecol Br Emp* **39** : 550—557, 1932
- 8) Khudyak V, Lysy J, Mankuta D : Achalasia in pregnancy. *Obstet Gynecol Surv* **61** : 207—211, 2006
- 9) Elakkary E, Duffy A, Roberts K et al : Recent advances in the surgical treatment of achalasia and gastroesophageal reflux disease. *J Clin Gastroenterol* **42** : 603—609, 2008
- 10) Ghoshal S, Davies AJ : An unusual case of vomiting and weight loss in pregnancy-oesophageal achalasia. *J Obstet Gynaecol* **27** : 622—623, 2007
- 11) Palanivelu C, Rangarajan M, Maheshkumaar GS et al : Laparoscopic Heller's cardiomyotomy for achalasia of the cardia in a pregnant patient. *Ann Acad Med Singapore* **37** : 442—443, 2008
- 12) Pulanic R, Kalauz M, Opacic M et al : Successful pneumatic dilation of achalasia in pregnancy. *Dig Liver Dis* **40** : 600—601, 2008
- 13) Tsuboi K, Omura N, Yano F et al : Results after laparoscopic Heller-Dor operation for esophageal achalasia in 100 consecutive patients. *Dis Esophagus* **22** : 169—176, 2009

Pregnant Woman with Esophageal Achalasia complicated by a Huge Esophageal Submucosal Hematoma : A Case Report

Yuichiro Tanishima, Hideyuki Kashiwagi, Katsunori Nishikawa, Toshiyuki Sasaki,
Akira Matsumoto, Fumiaki Yano, Nobuo Omura and Katsuhiko Yanaga
Department of Surgery, Jikei University School of Medicine

We report a rare case of pregnancy involving esophageal achalasia complicated by severe anemia and fetal distress due to a huge submucosal hematoma. A 32-year-old pregnant woman admitted for hematemesis and severe anemia suffered loss of consciousness, causing fetal distress. Computed tomography and endoscopic examination detected esophageal dilation, submucosal esophageal hematoma, blood pooling in the esophageal lumen, and lower esophagus tortuosity. Emergency surgery involved a Caesarean section, Heller myotomy with Dor fundoplication, and gastrostomy. The postoperative course was uneventful, with the patient discharged on post operative day 18, and the premature infant after a 3-month stay in the neonatal intensive care unit.

Key words : esophageal achalasia, pregnancy, esophageal submucosal hematoma

[Jpn J Gastroenterol Surg 43 : 1014—1018, 2010]

Reprint requests : Yuichiro Tanishima Department of Surgery, Jikei University School of Medicine
3-25-8 Nishi-shinbashi, Minato-Ku, 105-8461 JAPAN

Accepted : June 9, 2010