症 例

胸水ドレナージ後の腹水の減少で横隔膜交通症と診断した肝性胸水の1例

東京歯科大学市川総合病院外科¹⁾, 同 臨床検査科²⁾

須田 秀太郎¹⁾ 江口 圭介¹⁾ 瀧川 稔¹⁾
和田 徳昭¹⁾ 宮内 潤²⁾ 松井 淳一¹⁾

症例は65歳、男性。アルコール性肝硬変による難治性腹水のため内科で加療中、労作時の呼吸困難を訴えた。画像診断と胸腔穿刺で右大量胸水貯留を指摘された。利尿薬投与、胸腔ドレナージによる治療では胸水貯留が十分に改善されない一方、胸水排液後に腹水が減少する所見から、横隔膜交通症が疑われ外科へ転科となった。経過から内科的治療法では大量胸水のコントロールは困難と判断し、十分なinformed consentを行った上で胸腔鏡下手術を行った。全身麻酔下で胸腔内を観察すると、右横隔膜の腱中心付近に2箇所の瘻孔を確認した。瘻孔2箇所を一括して自動縫合器で切除し、ポリグリコール酸 (PGA) シートで被覆した。術後経過は良好で、脳出血で死亡するまでの1年8カ月、胸水再発を認めなかった。今回、横隔膜交通症を診断して胸腔鏡手術を施行した1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

索引用語：横隔膜交通症、肝性胸水、胸腔鏡下手術

はじめに

横隔膜交通症による胸水は、腹腔と交通する横隔膜の小孔を通じて、大量の腹水が圧勾配により胸腔内に流入する病態である。今回、肝性腹水に伴う胸水貯留を横隔膜交通症と診断し、胸腔鏡手術により横隔膜の小孔を閉鎖し胸水貯留を制御した1例を経験したので報告する。

症 例

患者：65歳、男性。

主訴：労作時呼吸困難。

既往歴：7カ月前に食道表在癌に対して内視鏡的粘膜切除を施行した。5カ月前に化膿性脊椎炎を発症し、ドレナージや抗生物質による治療を継続中であった。

生活歴：飲酒は日本酒1日1-2合を25年間、喫煙は1日20本を40年間続けていた。

現病歴：アルコール性肝硬変による肝性脳症と難治性腹水の治療のために当院消化器内科入院中に労作時呼吸困難を訴え、胸部単純X線写真 (Fig. 1) で大量の右胸水の貯留を指摘された。

血液学的所見：総蛋白6.3g/dl, アルブミン1.9g/dl, 総ビリルビン2.1mg/dl, 血清AST 37U/l, ALT 1U/l, γ -GTP 65U/l, アンモニア127 μ g/dl, プロトロンビン活性値53.3%でIII度脳症と腹水貯留の所見を合わせて、肝硬変はChild-Pugh分類でCに分類された。

Fig. 1 胸部単純X線写真 (坐位)：右胸水貯留による右肺野の透過性の低下、縦隔の健側偏位が認められる。

2019年1月30日受付 2019年6月10日採用

〈所属施設住所〉

〒272-8513 市川市菅野5-11-13

Fig. 2 胸腹部CT検査所見：(a), (b) 発症直後. 大量の右胸水と少量の左胸水 (a), および大量の腹水 (b) を認める. (c), (d) 7日間の右胸腔ドレナージ (500ml/日) 後. 右胸水の減少と左胸水の消失 (c) とともに腹水の減少 (d) が認められる.

肝炎ウィルスマーカーは陰性であった. BUN 38.4mg/dl, クレアチニン1.21mg/dlと軽度の腎障害を認めた.

CT所見：呼吸困難時の単純胸部CTでは, 大量の腹水と右胸水貯留による右完全無気肺, 縦隔の左側変位と少量の左胸水を認めた (Fig. 2a, b). 右胸腔ドレーンを挿入し, 1日量500ml程度の胸水の排液を7日間継続したが, 胸水貯留の改善が乏しく外科へ転科となった. その後も胸水ドレナージを継続すると, 腹水の減少が確認された (Fig. 2c, d). 相当量の体液の交通がある横隔膜交通症と診断して, 十分な informed consent の後に手術を施行した.

手術所見：全身麻酔, 左右分離換気で左側臥位をとり, 第7肋間中腋窩線上に12mm径のポートを挿入し, 30度斜視硬性鏡を使用して胸腔内を観察した. さらに, 第7肋間前方と胸腔鏡用のポートとの間, 第10肋間後腋窩線上に3箇所ポートを追加して胸腔鏡下手術を開始した.

横隔膜を胸腔鏡で観察したところ, 臍中心付近に4

-5mmの欠損孔 (矢印) を2箇所認めた (Fig. 3a). 直接的な腹水の胸腔内への流入は直接観察できなかったが, これを胸水貯留の原因と考えた. 横隔膜の全面を胸腔鏡で観察したが, 他部位には同様の変化は認められなかった. Endo GIA™のTri-Staple™ 60mmおよび40mmのカートリッジ (コヴィディエン) を使用し2個の小孔を糸で牽引しつつ一括に切除, 閉鎖した (Fig. 3b, c). 縫合線をポリグリコール酸 (PGA) フェルトで被覆し (Fig. 3d), 胸腔ドレーンを挿入して閉鎖した. 1時間23分, 出血少量で手術を終了した.

術後経過：術後胸水貯留を認めず, 第7病日に胸腔ドレーンを抜去して内科病棟へ転床した. 術後腹水は徐々に増加し, 利尿薬のコントロールを要したが, 胸水の再貯留を認めず軽快退院した. 患者は1年8カ月後に左視床出血の脳室内穿破のため死亡したが, 胸水の再発を認めなかった.

病理組織学的所見 (切除標本)：横隔膜切除標本は欠損孔の部分に山折りにして, 胸膜面を外側に, 腹膜

Fig. 3 胸腔鏡手術所見：(a) 横隔膜の小孔（2箇所）。(b) 小孔部の縫合糸による牽引。(c) ステップラーによる同部の切除と閉鎖。(d) PGA フェルトによる被覆。

Fig. 4 病理組織学的所見：横隔膜には腱組織（A）の断裂（B）が見られ、その近傍から裂隙状構造（C）が胸膜面直下に及び、その周囲には炎症性肉芽組織（矢印）が認められる（Th：胸腔，Ab：腹腔）．H.E. 染色（対物レンズ×4）．

側を内側にした形で作製した（Fig. 4）．欠損孔に相当する部分では腱組織が断裂しており，同部近傍から胸膜面直下にまで続く裂隙状構造が見られ，その内面には中皮細胞が見られることから，腹膜と胸膜の間に形成された瘻孔に相当すると考えられた．この裂隙構造周囲には慢性炎症細胞浸潤を伴った肉芽組織の増生が認められた．

考 察

肝硬変患者の腹水および胸水は肝硬変患者の0.4-

12.2%に認められる病態である¹⁾．Williamsらは腹水を伴う肝硬変で突然の大量胸水を認めた患者に対し，診断的な気腹検査を行うと急速に気胸が生じる結果から横隔膜の欠損孔がその原因であると示唆した²⁾．Emersonらは同様の患者の剖検例で横隔膜腱中心の小孔を確認した³⁾．肝性胸水以外にもMeigs' syndrome, 腹膜透析中の胸水貯留，子宮内膜症性気胸など，先天的または後天的に経横隔膜的に液体やガスが交通することによって起こる臨床的な病態をKirschnerはporous diaphragm syndromeとして分類した⁴⁾．本症例でも横隔膜の腱中心付近に小孔を確認することができたが，組織学所見からは先天的な要因のみによる欠損孔と言うよりは，横隔膜の筋組織が疎となる腱中心付近の，先天的に菲薄な部分に胸腔内の陰圧や腹水による圧力が影響して嚢胞化が起り，瘻孔を形成したのではないかと推察される．

本邦では腹膜透析中の患者の横隔膜交通症による胸水貯留の治療経験の報告が多く見受けられる^{5)~9)}．腹膜透析中の場合，術中還流カテーテルからの注水により横隔膜の瘻孔を容易に確認することができる．肝硬変に伴う横隔膜交通症の手術例の報告^{10)~19)}は前者よりは若干少なくなるが，肝性胸水の場合，漏出性の胸水の症例も混在するため，横隔膜交通症との鑑別も必要となる．本邦における肝硬変に伴う横隔膜交通症に対する胸腔鏡手術の報告例の診断法では，胸腔鏡観察により横隔膜の小孔を確認したものや，腹腔内への色

Table 1 横隔膜交通症に対し、自動縫合器を用いた横隔膜修復術施行後、横隔膜ヘルニアを発症した本邦報告例^{[21)~24)}

No.	報告者 (報告年)	原疾患	既往手術	使用自動縫合器	発症までの期間
1	懸川ら (2005)	月経随伴性気胸	胸腔鏡下右横隔膜部分切除術	Double-Staple 45mm 3本	6カ月
2	岡本ら (2008)	月経随伴性気胸	胸腔鏡下左横隔膜部分切除術	記載なし	2年
3	峯岸ら (2014)	胸腺癌	胸腔鏡下肺右中葉・右横隔膜部分切除術	Double-Staple 60mm	2カ月
4	峯岸ら (2014)	浸潤型胸腺腫術後 再発	胸腔鏡補助下右横隔膜部分切除術	Double-Staple 60mm	7カ月
5	田中ら (2016)	胸郭内子宮内膜症	胸腔鏡下左横隔膜部分切除術	Tri-Staple 45mm	3カ月

素注入、放射線同位元素注入あるいは気腹することにより胸腔内への流入を確認しているものがあった^{[12)~19)}。

肝硬変患者は全身状態も不良な症例が多く、確実に小孔の閉鎖が必要な症例を選択する必要がある。本症例に見られた胸水の排除による腹水の減少は、相当量の横隔膜を介する体液の交通があることが推測されるため漏出が主体の胸水貯留とは考えにくく、小孔を介した横隔膜の交通が強く疑われる所見として重要である。この所見と術中に実際の横隔膜に孔が確認できれば、そのほかの確認法の施行する意義は低いと考えられる。

横隔膜欠損孔修復手術では、75%程度の症例で胸水が制御可能であったと報告されており^{[20)}、本症例のような状態不良な肝硬変患者では適応に悩む点はあるが、大量の排液の継続による状態の悪化を避けるためにも、胸腔鏡手術によるなるべく低侵襲な治療を目指すことを考えた。芳賀らは術後8日目に死亡した症例が、発症後77日後の手術治療であったことから、より早期に横隔膜交通症に対処すべきであったと述べている^{[15)}。横隔膜の小孔は直接縫合^{[13)}か切除後縫合^{[14)}、自動縫合器による切除^{[16)}などが行われており、癒着療法やPGAや酸化セルロースなどの繊維による補強が追加されている報告もある。池田らは小孔の確認できなかった例で横隔膜全面にPGAフェルトを貼付して対応している^{[17)}。本症例では原因と考えられる欠損孔以外に横隔膜に明らかな変化がないことを目視で確認し、横隔膜全面のPGAフェルト貼付などの処置は行わなかったが、症例によっては追加の補強処置も検討

すべきかもしれない。転帰に関しては術後再発の記載は少ない。

本症例では手術時間を短縮し侵襲を軽減する目的で横隔膜の修復に自動縫合器を用いたが、横隔膜の修復に自動縫合器を用いるのは議論のあるところである。「自動縫合器、横隔膜ヘルニア」をキーワードに医学中央雑誌の2006年から2019年で検索し、本邦における自動縫合器による横隔膜切除後に横隔膜ヘルニアを呈した報告例はこれまで5例^{[21)~24)}が報告されている(Table 1)。4例にはDouble-StapleTMが使用され、1例のみTri-StapleTMが使用されている^{[24)}。峯岸ら^{[23)}は筋弛緩薬を用いた全身麻酔下の手術中に切除した横隔膜縫合部に、術後の自発呼吸運動に伴う緊張が過度に加わってしまい容易に縫合線が離開してしまう可能性について言及しており、自動縫合器を横隔膜縫合に使用することについては検討が必要であると述べている。本症例では自動縫合器を使用し、術後の症状の再発を認めなかったが、今後、症例の集積による検討が必要であると考ええる。

横隔膜欠損孔の直接閉鎖以外の治療法としては、胸腔腹腔シャント^{[25)}、胸腔静脈シャント^{[26)}、経頸静脈的肝内門脈大循環シャント術(TIPS)^{[1)}、タルクによる癒着療法などの方法が報告されている^{[27)}。タルクは本邦では適応外使用であるが、透析患者に対する治療例に比較すると肝硬変患者での成功率はやや低いとされている^{[28)}。Wilputteらは重度の肝硬変例では中等度の肝硬変例と比較し、TIPSの有効率が低いと報告しており、TIPSの適応はChild-Pugh分類でB以上の肝機能の残存が必要であると報告している^{[29)}。本症例は

Child-Pugh分類においてCであり、TIPSを選択するべきではないと判断した。また、以上より、肝硬変に伴う急速かつ大量胸水の患者に横隔膜交通症が診断された場合には可及的早期に胸腔鏡手術により横隔膜交通を遮断し、腹水のコントロールに専念できる状況に戻すことが治療全体にとって重要と考えられる。

結 語

胸水ドレナージ後の腹水の減少で横隔膜交通症と診断した肝性胸水の1例を経験した。肝硬変に伴う大量胸腹水の患者では、横隔膜交通症が原因の場合があり、横隔膜交通症の存在を疑い臨床症状と経過を注意深く診る必要がある。貯留した胸水の排除により腹水の軽減が認められるような症例では、特に瘻孔閉鎖術を検討する意義があると考えられた。

本稿の要旨は第82回千葉県外科医会（2018年3月、千葉）にて発表した。

利益相反：なし

文 献

- Gordon FD, Anastopoulos HT, Crenshaw, et al : The successful treatment of symptomatic, refractory hepatic hydrothorax with transjugular intrahepatic portosystemic shunt. *Hepatology* 1997 ; 25 : 1366-1369
- Williams MH Jr. : Pleural effusion produced by abdomino-pleural communication in a patient with Laennec's cirrhosis of the liver and ascites. *Ann Intern Med* 1950 ; 33 : 216-221
- Emerson PA, Davies JH : Hydrothorax complicating ascites. *Lancet* 1955 ; 268 : 487-488
- Kirschner P : Porous diaphragm syndromes. *Chest Surg Clin North Am* 1998 ; 8 : 449-472
- 竜崎崇和, 松下雅博, 半田みち子他 : 横隔膜交通症に対し胸腔鏡下瘻孔閉鎖術が有効であった1例. *腹膜透析* 1998 ; 98 : 142-145
- 椎名隆之, 細田 裕 : CAPD導入時に発見された横隔膜交通症の1例. *日臨外会誌* 2006 ; 67 : 2589-2594
- 棚瀬みやび, 友常里奈, 棚瀬健仁他 : CAPD患者に合併した横隔膜交通症に対して胸腔鏡下横隔膜縫縮術を施行した1例. *日透析医学会誌* 2009 ; 42 : 729-733
- 穴戸 崇, 竜崎崇和, 滝本千恵他 : 胸腔鏡下手術後に横隔膜交通症の再発を認めたCAPD患者の1例—本邦における報告例のまとめ. *日透析医学会誌* 2010 ; 43 : 873-879
- 佐野史歩, 須藤学拓, 植木幸一他 : 腹膜透析中の横隔膜交通症に対し胸腔鏡下横隔膜縫縮術を施行した2例. *日呼外会誌* 2011 ; 25 : 794-799
- 三好謙一, 孝田雅彦, 磯本 一他 : 肝性胸水を伴った肝硬変症例の横隔膜交通症に対する横隔膜縫縮術の有用性. *日門脈圧亢進症会誌* 2016 ; 22 : 234-239
- 神保充孝, 郷良秀典 : コントロール困難な肝性胸水を伴う横隔膜交通症に対し気腹により瘻孔を同定, 閉鎖した2例. *日呼外会誌* 2014 ; 28 : 177-182
- 山根正修, 小林沙代, 黒崎 亮他 : 胸腔鏡下に修復した難治性肝性胸水を伴う横隔膜交通症の1例. *胸部外科* 2006 ; 59 : 1127-1130
- Ibi T, Koizumi K, Hirata T, et al : Diaphragmatic repair of two cases of hepatic hydrothorax using video-assisted thoracoscopic surgery. *Gen Thorac Cardiovasc Surg* 2008 ; 56 : 229-232
- 坂本鉄基, 岩澤 卓, 細見尚弘他 : 気腹により横隔膜交通部を同定した難治性肝性胸水の1例. *日臨外会誌* 2010 ; 71 : 2321-2325
- 芳賀高浩, 福岡みずき, 森田瑞生他 : 治療中に肺クリプトコッカス症, MRSA膿胸を合併した肝性胸水の1例. *日胸臨* 2015 ; 74 : 1260-1265
- 加藤 健, 板垣秀弥, 齊藤 孝他 : 肝性胸水に対する胸腔鏡手術の検討. *日内視鏡外会誌* 2017 ; 22 : 633-639
- 池田康紀, 関 哲男, 小森俊昭他 : 難治性肝性胸水に対して胸腔鏡下にPGAフェルトを用いた胸膜癒着術が奏効した1例. *日呼外会誌* 2012 ; 26 : 64-68
- 田畑潤哉, 上田 和, 永吉陽子他 : 胸腹腔鏡同時手術により診断・治療しえた横隔膜交通症. *東京産婦会誌* 2016 ; 65 : 82-88
- 坪島顕司, 的場保巳, 佐藤雅信他 : 血液透析患者に発症した肝硬変に伴う横隔膜交通症に対する胸腔鏡手術の1例. *胸部外科* 2012 ; 65 : 599-601
- Mouroux J, Perrin C, Venissac N, et al : Management of pleural effusion of cirrhotic origin. *Chest* 1996 ; 109 : 1093-1096
- 岡本信彦, 松井淳一, 堀口速史 : 月経随伴性気胸

- に対する横隔膜部分切除術後の横隔膜ヘルニアに対し腹腔鏡下手術で修復し得た1例. 日内視鏡外会誌 2008 ; 13 : 769-773
- 22) 懸川誠一, 上吉原光宏, 大谷嘉己他 : 月経随伴性気胸に対し横隔膜部分切除術後に横隔膜ヘルニアをきたした1例. *Kitakanto Med J* 2005 ; 55 : 269-272
- 23) 峯岸健太郎, 中野智之, 柴野智毅他 : 自動縫合器による横隔膜切除後の横隔膜ヘルニア. *胸部外科* 2014 ; 67 : 959-962
- 24) 田中崇洋, 西川 徹, 内藤雅人他 : 腹腔鏡下根治術を行った左横隔膜部分切除術後横隔膜ヘルニアの1例. *日臨外会誌* 2016 ; 77 : 1942-1946
- 25) 城 祐輔, 稲垣恭孝, 宮尾直樹他 : 99mTc-MAAにより胸水が腹腔からの移行であることを証明し, 胸腔腹腔シャントが著効した難治性肝性胸水の1症例. *肝・胆・脾* 2007 ; 54 : 157-161
- 26) Bayram AS, Köprücüoğlu M, Azgün M, et al : Pleurovenous shunt for treating refractory benign pleural effusion. *Eur J Cardiothorac Surg* 2008 ; 33 : 942-943
- 27) Ferrante D, Arguedas MR, Cerfolio RJ, et al : Video-assisted thoracoscopic surgery with talc pleurodesis in the management of symptomatic hepatic hydrothorax. *Am J Gastroenterol* 2002 ; 97 : 3172-3175
- 28) Tang S, Chui WH, Tang AW, et al : Video-assisted thoracoscopic talc pleurodesis is effective for maintenance of peritoneal dialysis in acute hydrothorax complicating peritoneal dialysis. *Nephrol Dial Transplant* 2003 ; 18 : 804-808
- 29) Wilputte JY, Goffette P, Zech F, et al : The outcome after transjugular intrahepatic portosystemic shunt (TIPS) for hepatic hydrothorax is closely related to liver dysfunction : along-term study in 28 patients. *Acuta Gastroenterol Belg* 2007 ; 70 : 6-10

POROUS DIAPHRAGM SYNDROME WITH HEPATIC HYDROTHORAX DIAGNOSED BY DECREASING ASCITES FOLLOWING CHEST DRAINAGE—REPORT OF A CASE—

Shutaro SUDA¹⁾, Keisuke EGUCHI¹⁾, Yutaka TAKIGAWA¹⁾,
Noriaki WADA¹⁾, Jun MIYAUCHI²⁾ and Junichi MATSUI¹⁾

Departments of Surgery¹⁾ and Pathology²⁾, Tokyo Dental Collage Ichikawa General Hospital

A 65-year-old Japanese man, who had been on treatment for resistant massive ascites and hepatic encephalopathy due to alcoholic liver cirrhosis in our hospital, complained of dyspnea on exertion. Radiological findings and a thoracocentesis revealed massive right pleural effusion. Hepatic hydrothorax due to diaphragmatic fenestration was suspected, because massive hepatic ascites decreased following chest drainage, whereas diuretic and thoracic drainage did not improve thoracic effusion. From his clinical course, we determined that internal treatment could not control massive pleural effusion. Under general anesthesia, thoracoscopic surgery was performed after we obtained informed consent. Two tiny pores at the right hemidiaphragm were found, cut and sutured with a GIA stapler and covered with a polyglycolic acid (PGA) sheet. Post operative course was uneventful, and there had been no recurrence of hydrothorax for one year and eight months until his death due to cerebral hemorrhage.

Key words : porous diaphragm syndrome, hepatic hydrothorax, video-assisted thoracoscopic surgery