膀胱結石を伴える膀胱性鎖肛

東京大學醫學部附屬病院分院泌尿器科 助手 志 田 圭 三
(醫長 助教授 落合京一郎) 副手 金 井 三 郎

A CASE OF ATRESIA ANI VESICALIS ASSOCIATED WITH A BLADDERSTONE

Keizo Shida and Saburo Kanai

From the Urological Clinic, The Branch Hospital of Medical Faculty, University of Tokyo.

(Director: Assistant Prof. K. Ochiai)

緒 言

先天性鎖肛は臨床上かなり屢々遭遇するところの畸形であるが、鎖肛に加うるに直腸と下部尿路間の交通を有するが如き畸形が治療對象となることは極めて稀である。最近東大分院泌尿器科に於て直腸膀胱連合を有する先天性複雑鎖肛の1例を経験したのでここに報告する次第である。

症 例

患者：大塚某，2年9カ月の男兒。初診，昭和25年8月14日。

現病歴：正規安産，出産直後肛門閉鎖を發見され，2日後東大分院外科に入院。肛門部に相當して切開を加え直腸盲端を求めたが直腸ははるか高位にあり，肛門成形手術は不可能なため，やむを得ず瘻管を設置された。術後瘻孔は漸次せまくなつて排便障害を訴え，4カ月後には遂にイレウスに近い状態となつたので，再入院し，新たに人工肛門を設置された。その後の経過は順調で，身體の發育状態も全く健康兒とかわりなかつた。

しかし25年8月上旬以來，高度の排尿痛，尿意頻度を訴える様になり，更に尿渾濁，尿線中絶をも認めるに至つて當科を訪れた。

現病：年齢相應によく發育成長した榮養状態良好な男兒。

下腹部正中に手術創痕を認め，左下腹部に人工肛門あり，輸出脚部の腸粘膜はかなりつよく反轉脱出している。肛門部には大きな手術創痕が認められる。陰莖，睪丸には變化を認めないが，陰囊は正中縫線に於て深くきれてこみ，あたかも二

房性の様な外觀を呈している。

尿は強く渾濁し蛋白(++)，赤血球(+)，白血球(++)，桿及び球菌(++)。血液像には著變を認めない。

エーテル麻酔にて膀胱鏡検査を行つてみるに，膀胱粘膜は全般に互り發赤し，膿苔を以て被われ底部に扁豆大の結石が認められた。また，膀胱部單純撮影に於ても結石像が明らかに認められた。(第1圖)。

ところが入院後注意して觀察すると，人工肛門輸出脚部から尿臭ある分泌液が少量づゝ排泄されている事がたしかめられ，特に怒責啼泣した際に一層著明であつた。そこで人工肛門輸出脚にネラトンカテーテルを挿入，インジゴカルミン液を注入し，自然排尿を行わせてみると，10分後には中等度に青變した尿がカテーテルを通じて排泄された。以上の所見により，直腸と膀胱との間に交通のあることが確かとなつたが，これを更に確認するためにレ線検査を行つた。即ち，人工肛門輸出脚にネラトンカテーテルを通じてスギウロン120ccを注入，側位撮影を行つてみた。直腸内を充滿した造影劑は容易に膀胱内に流出して手拳大に擴張した膀胱像が直腸に接續して描出されたが，直腸像と膀胱像は互に重なりあつてゐるために兩者の間の連絡路を明瞭に描出する事は出来なかつた。次に，尿道より金屬カテーテルを挿入，膀胱内にNaJ 100ccを追加注入して同じく側位撮影を行つてみたが，前回と大體同様のレ線像が得られたにすぎぬ。即ち，膀胱と直腸との間に交

第1圖 膀胱部単純撮影

第2圖 側位直腸レ線像

第3圖 (第2圖模型)

第4圖

1. 膀胱, 2. 直腸, 3. 尿直腸中隔
4. 生殖丘, 5. 原始會陰, 6. 肛門輪

通のあることは明かであるが、その連絡はあまり大きなものではないと推定できる(第2, 3圖)。

手術: 8月25日、腰椎麻酔のもとに手術を施行した。高位切開にてまず膀胱結石を除去、膀胱底を精細にしらべてみると、頸部に近く直腸への瘻孔と思われる皺襞にとむ陥凹部を認める事が出来た。次いで腹膜をひらくに、腸管の癒着が高度なためS状腸、直腸と膀胱との関係は明瞭ではなかつた。そこで人工肛門輸出脚よりネラトシカ

テーターを2本つなぎ合せて(長さ約60cm)挿入し、これに沿つて、S状腸から直腸下方を追求してみると、S状腸は過長にして癒着蛇行し、所々狭窄を示しその長さは60cmをこえている。直腸は周囲を高度に癒着しているが、その大部分を剝離して下方へ追求したところ、その末端は膀胱底部(膀胱内で皺襞にとむ陥凹部に相当した部位)に接續していて、挿入したカテーター先端はこゝに達していることを確認できた。癒着高度のため該

部を切斷して、確實に縫合閉鎖する事は困難と考えられたので、直腸下端を太い絹絲を以て絞扼閉鎖、膀胱との連絡を遮斷し手術を終えた。

なお興味ある所見として、膀胱が年齢に比して非常に大きく、また、尿管の膀胱への接合部位が左右不均齊であることをも認めた。即ち、左側は大體正常の位置であるが、右側ははるかに上側方に於て膀胱内に注いでいた。

膀胱瘻を設置し、尿道にカテーテルを留置した。術後の経過は順調で2週後に全治、退院した。摘出した膀胱結石は0.2g、磷酸鹽結石であつた。

考 按

統計並に分類：鎖肛 (Atresia ani) は比較的瘻とみとめられる畸形の一つであつて、Jacubowitsch によれば新産兒 75,000 例中 15 例に、Anders によれば 230,000 例中 21 例に鎖肛が認められたという。また、三谷・星野の報告によれば 49,645 例の分娩中高度の畸形が 451 例發見され、そのうち兔唇、狼咽、口蓋披裂がもつとも多く 94 例で、鎖

肛は 14 例であつた。本畸形は男子よりも女子に稍と多い様であつて、伊藤の本邦集計 70 例中、男子 26 例、女子 37 例、不明 7 例であつた(第 1 表)。

第 1 表

鎖 肛 の 種 類				症 例 數
單	純	鎖	肛	25
複	雜	鎖	肛	45
連合を有する複雜鎖肛	鎖肛兼直腸腔連合			12
	鎖肛兼直腸膀胱連合			1
	鎖肛兼直腸尿道連合			4
瘻孔を有する複雜鎖肛	會陰瘻を有する鎖肛			6
	尿道下瘻を有する鎖肛			1
	陰囊瘻を有する鎖肛			2
	腔前庭瘻を有する鎖肛			19

(伊藤氏より)。

Stieda は先天性鎖肛を單純鎖肛と複雜鎖肛とに分け、更に後者を閉鎖した直腸盲端が體の他の部位に異常開口するもの (例えば膀胱、後部尿道、腔等の内腔に連絡を有するもの) と、直腸盲端から體表への瘻孔を有するものの 2 種に分類している(第 2 表)。

第 2 表

I. Atresia ani s. recti congenita simplex

1. Atresia ani simplex
2. Atresia recti simplex
3. Atresia ani et recti

II. Atresia ani (s. recti) complicata cum communicationibus

1. Atresia ani et communicatio recti cum vagina
.....Atresia ani vaginalis
2. Atresia ani et communicatio recti cum vesica urinaria
.....Atresia ani vesicalis
3. Atresia ani et communicatio recti cum parte prostatica urethraeAtresia ani prostatica

III. Atresia ani (s. recti) complicata cum fistulis

1. Atresia ani cum fistula perineali Atresia ani perinealis
2. Atresia ani cum fistula scrotaliAtresia ani scrotalis
3. Atresia ani cum fistula suburethraliAtresia ani suburethralis
4. Atresia ani cum fistula vestibulari Atresia ani vestibularis

單純鎖肛

連合を有する複雜鎖肛
鎖肛兼直腸腔連合
...腔性鎖肛
鎖肛兼直腸膀胱連合
...膀胱性鎖肛
鎖肛兼直腸尿道連合

瘻孔を有する複雜鎖肛
會陰瘻を有する鎖肛
...會陰性鎖肛
陰囊下瘻を有する鎖肛
...陰囊性鎖肛
尿道下瘻を有する鎖肛
...尿道性鎖肛
腔前庭瘻を有する鎖肛
...腔前庭性鎖肛

(Stieda に據る)

鎖肛のうちで最も多いものは單純鎖肛で、腔前庭瘻を有する複雜鎖肛、直腸腔連合を有する複雜鎖肛がこれに次ぎ、本症例の如く直腸膀胱連合を

有するものは極めて稀である。例えば伊藤の本邦症例集計(第 1 表)によつても明らかな様に、本例は長澤、伊藤について本邦文獻上の第 3 例目と考

えられる。

發生學：胎生初期(第4週初期)に於て終腸は尿管、Wolff氏管と共に總排泄腔に開口し、總排泄腔は總排泄腔膜(Cloaca membrane)を以て、外界よりとざされている。やがて(第4週終期)尿管と終腸の合流部の中胚葉組織が増殖を開始して隔壁をつくり、これと同時にその側壁に於て上記隔壁の延長ともいふべき一對の皺襞が生じ(Rathke氏皺襞)、その皺襞は前記隔壁の下降にともない左右のものが正中線上に於て頭側より尾側にむかつて漸次癒合を開始し、直腸尿管隔(Septum urorectale Douglassi)となつて總排泄腔膜と癒合し、總排泄腔を腹背の2部分に分つ(第4圖)。背側部は後に直腸となり、腹側部の尿管管に近い部分より膀胱が形成される。Wolff氏管開口部より尾側部は尿生殖洞(Sinus urogenitalis)と名づけられ、男子に於ては射精管以上の尿道前立腺部、膜様部及び球部の近位端を形成、女子に於ては陰前庭となる。

直腸尿管隔が總排泄腔膜に癒合することにより後者は3部分に分かれる。癒合部は原始會陰といい前方は尿生殖洞を隔てる尿生殖膜で、後方は終腸を隔して肛門膜とよばれる、肛門膜兩側縁部に於て増殖する肛門輪により肛門窩が圍繞形成されるわけで、肛門輪の兩前縁は會陰唇といい、左右癒合して、永久會陰をつくる。かくして永久會陰が完成するや、肛門膜は肛門窩深く陷凹し、尿生殖膜の開通より稍とおくれて破開し肛門を形成するに至る。また一方、總排泄腔膜の側縁隆起が頭側の方に於て癒合して生殖丘をつくり、後の陰莖(陰核)の原基をなす。また生殖丘基底をとりまき尿生殖膜兩側縁部に發生する生殖隆起(Torus genitalis)及び生殖襞(Plica genitalis)は女子に於てはそれぞれ大陰唇、小陰唇となり、男子に於ては左右癒合して陰囊、前部尿道の形成にあずかる。

Rathke氏皺襞相互の癒合障碍により尿直腸中隔の正中線上に缺損部を生ずるか、あるいは尿直腸中隔と總排泄腔膜との癒合が不完全な時は、腹背兩腔の交通は完全には遮斷されず、直腸は同じく總排泄腔から由來した膀胱、後部尿道等の内胚

葉性器管と交通を有する状態となる。これが連合を有する複雑鎖肛(内瘻孔性鎖肛)の發生病理である。

瘻孔を有する複雑鎖肛(外瘻孔性鎖肛)の發生病理に關しては諸説がある。Frank等は永久會陰を形成する會陰唇相互間、または夫等と尿直腸中隔下縁との間の癒合機序の障碍、即ち、純然たる外胚葉性障碍によつて生ずると述べている。これに對して、Stiedaは、連合を有する鎖肛は前記の如く内胚葉性の發生抑制機序によつて生ずるものであるが、瘻孔を有する鎖肛は全く正常な發生過程に認められぬ内胚葉の病的過程によつて生ずるものであるという。即ち、直腸盲端に滞留した胎便の壓により直腸壁が伸展され中胚葉組織を貫いて、遂に體表にやぶれて瘻孔を形成するものであると説明している。

臨床病狀：單純鎖肛に於ては重篤な腸管通過障碍が唯一の症狀であつて、肛門形成術または人工肛門設置術を行う事により容易にこれを救ふことが出来る。

瘻孔を有する複雑鎖肛では外瘻孔が太いことが多いので排便障碍も比較的軽く、殊に前庭性鎖肛に於ては全く通過障碍なく日常生活は勿論のこと、性交、妊娠、分娩に際しても何等の異常なく経過する症例も少くない。

しかし膀胱性鎖肛や尿道性鎖肛に於ては腸管の通過障碍に加うるに、糞塊の尿路内流入により甚だ重大な尿路合併症を發生することになり易い。

本症例に於ては入院後も軽度の發熱と左下腹部の疼痛があり、人工肛門輸出脚よりゴム管挿入、擴張された腸管を洗滌したところ、鬱滯していた惡臭ある多量の粘液性内容物の排出をみ、それより全身状態もやや好轉した。即ち直腸内容の膀胱内流入によつて膀胱炎及び恐らく微細糞塊を核として結石を續發したものと考えられる。伊藤の症例に於ても同様であつて、人工肛門設置により腸管の通過障碍が除かれても、直腸内容の膀胱内流入により他の膀胱腸瘻に於けると同様に膀胱炎が容易に惹起され、更に結石の發生をみている。なお高橋(博)によれば膀胱腸瘻67例中5例に結石發

生がみられたといい、糞路と尿路の交通ある時は結石の發生が少くない。なお長澤の症例は生後5日にして死亡した膀胱性鎖肛の症例であるが、膀胱のみならず、尿管、腎盂迄も胎糞を以て汚染され、高度の腎盂腎炎をひきおこしていた。

結 論

鎖肛のため出産直後に人工肛門を設置された3年9カ月の男子に於て膀胱結石の發生を認めたが、精査の結果、膀胱と直腸が連絡した膀胱性鎖肛の稀有な畸形例と診斷された。膀胱結石を摘出するとともに、手術的に膀胱と直腸との連絡を確認し、この部に於て直腸を絹絲で絞扼結紮するに

より全治せしめ得たもので、恐らく擴置された直腸内容が膀胱内に流入したために膀胱炎及び膀胱結石を續發したものと考えられる。なお本症例に關連して複雑鎖肛につき若干の文獻的考察をも試みた。

市川教授の御校閲を深謝する

文 獻

- 1) 伊藤昇: 海軍々醫會誌, 32:490, 昭18. —2) 長澤米藏: 日本醫科大誌, 2:104, 昭6. —3) 三谷茂, 星野方: 日本醫科大誌, 11:1787, 昭15. —4) Parin, B.: Arch. klin. Chir., 166, 386, 1931. —5) Stieda, A.: Arch. klin. Chir., 70:555, 1903. —6) 高橋博元: 未發表.