

Meconium Disease と考えられた 2 新生児例

石曾根新八¹⁾ 寺田 克¹⁾ 百瀬芳隆¹⁾
本田晴康¹⁾ 川崎誠治¹⁾ 幕内雅敏¹⁾
北原修一郎²⁾ 清水公男²⁾
1) 信州大学医学部第1外科学教室
2) 長野赤十字病院小児外科

Two Cases of Meconium Disease in the Infant

Shinpachi ISHIZONE¹⁾, Masaru TERADA¹⁾, Yoshitaka MOMOSE¹⁾
Haruyasu HONDA¹⁾, Seiji KAWASAKI¹⁾, Masatoshi MAKUUCHI¹⁾
Shuichiro KITAHARA²⁾ and Kimio SHIMIZU²⁾

1) *Department of Surgery, Shinshu University School of Medicine*

2) *Pediatric Surgery, Nagano Red-cross Hospital*

We report two cases of meconium disease in the infant.

Malrotation of the intestine and defect of the mesenterium were also present in one case, and localized elongation of the mesenterium with circulatory disturbance in the other.

In both cases mucoviscidosis was ruled out by the sweat test.

The PABA test for exocrine pancreatic function showed a low percentage in both cases (7.3 % and 7.7 %), suggesting a disturbance in exocrine pancreatic function. *Shinshu Med. J.*, 40 : 353—358, 1992

(Received for publication April 2, 1992)

Key words: meconium disease, meconium ileus, pseudo-Hirschsprung's disease, PABA test

メコニウム病, 胎便性腸閉塞症, ヒルシュスプルング病類縁疾患, PFD テスト

I はじめに

Meconium disease は mucoviscidosis を伴わない点を除いて, meconium ileus ときわめて似た臨床症状を示すとされており, meconium ileus のきわめて少ない我が国においても, meconium disease の報告が散見されるようになってきている。今回われわれは meconium disease と考えられた症例で, 腸間膜欠損, 腸回転異常症を合併した 1 例と限局性の腸間膜の過長に同部の腸管の血流障害を合併した 1 例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

症例 1

患 児: 日齢 4 日, 男児, 第 1 子。

主 訴: 胎便排泄遅延, 腹部膨満。

家族歴: 特記すべきことなし。

妊娠経過: 切迫流産のため 30 週で他院入院。

現病歴: 在胎 32 週 4 日, 前期破水のため帝王切開にて出生。生下時体重 1,570g。Apgar score 9 点 (1 分)。生後すぐに腹部膨満が増強したため NG tube が挿入され, 胆汁様の胃内容が吸引された。グリセリン浣腸が行われたが胎便の排泄なく, 日齢 4 日に行われた注腸造影で microcolon の所見を呈したため, 小

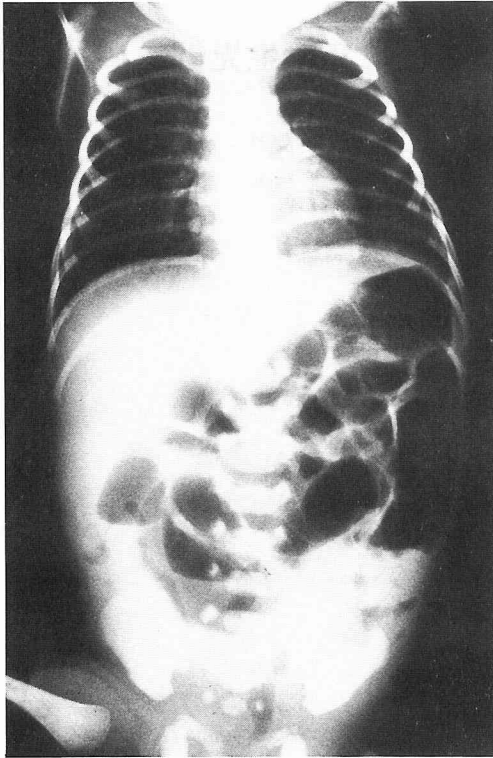


図1 症例1の腹部立位単純X線像



図2 症例1の注腸造影

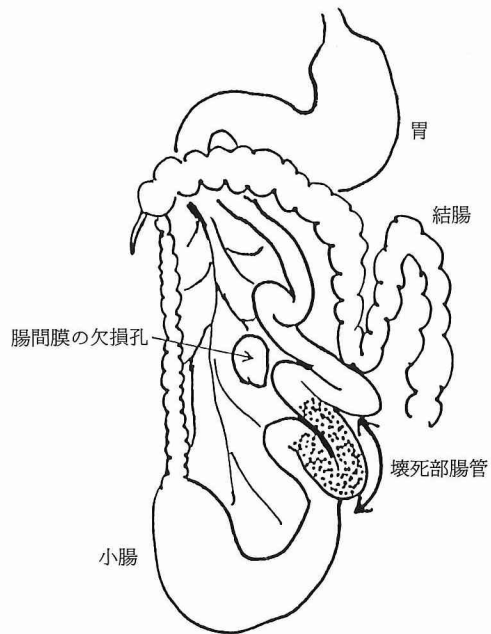


図3 症例1の術中所見

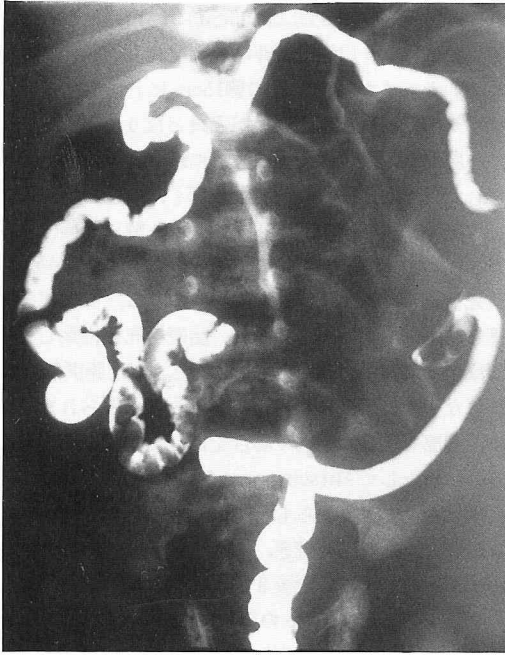


図 4 症例 2 の注腸造影

腸閉鎖症、または entire colon aganglionosis が疑われ、当院に紹介入院となった。

入院時、腹部は緊満しており、右側腹部に腸係蹄様の抵抗を触知した。腹部立位単純 X 線像 (図 1) では

小腸ガス像が増加し拡張していたが、鏡面像の形成はごく軽度であった。ガストログラフィン®の注腸造影 (図 2) では、直腸膨大部の拡張は良好であったが、それより口側の結腸に軽度の microcolon が認められ、また、上行結腸、盲腸が正中によっていた。以上より腸回転異常症、腸軸捻転の診断で手術を施行した。

手術所見：腸管は non-rotation の状態にあった。回腸末端より 30cm 口側に caliber change があり、その口側の回腸は著明に拡張していた。また、ここより 30cm 口側の腸間膜には径 3cm の欠損孔があり、約 10 cm の小腸が入り込み、捻転をきたし、壊死に陥っていた (図 3)。壊死に陥った腸管を切除し、残存回腸の内腔をみると、拡張部には黒緑色粘調性の、また肛門側の細い回腸には灰白色パテ様の小豆大から大豆大の胎便が充満していた。虫垂の生検より Hirschsprung 病は否定されたが、caliber change の原因が不明のため、何らかの原因による腸管の通過障害の存在を疑い、Bishop-Koop 型の腸瘻を造設し手術を終えた。

術後経過：小腸瘻にもかかわらず術後数日間は粘調性のある有形便が少量ずつ排泄され、腹部膨満が改善されないため、腸瘻よりガストログラフィン®による洗腸を必要とした。しかし、術後 13 日目頃より肛門から自然排便が得られ、腹部膨満も改善したため、術後 16 日目より成分栄養による経管栄養を開始した。この後も時に腹部膨満、便秘、下痢、嘔吐が出現したが、

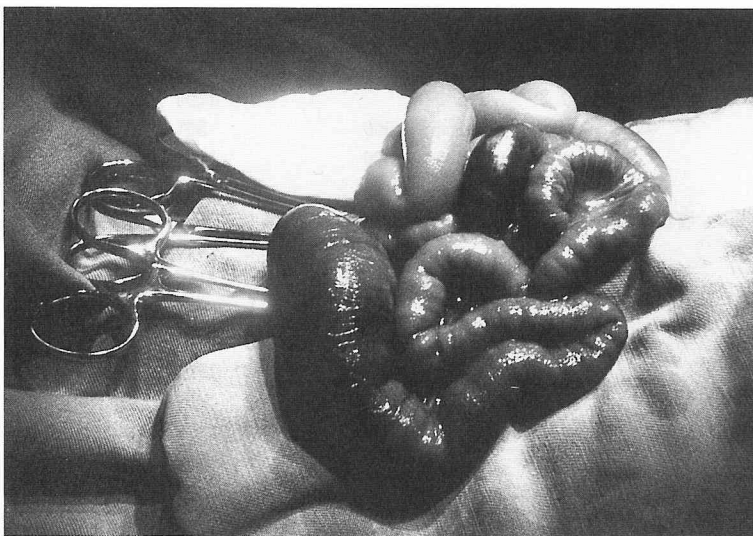


図 5 症例 2 の術中写真
(Caliber change を示す)

経過とともに消失し、術後94日、体重2,244gで退院した。

その後7ヵ月時に再入院し、腸瘻の閉鎖術が行われた。Meconium ileusも否定できないため、この入院中に汗の電解質を測定したところ、Na 25mEq/l, Cl 18mEq/lと低値であることから、最終的に meconium disease と診断した。また PFD テスト¹⁾は7.3%と低値であった。

症例2

患 児：日齢3日、男児、第1子。

主 訴：嘔吐、腹部膨満。

家族歴：特記すべきことなし。

妊娠経過：異常なし。

現病歴：在胎39週3日、他院で正常分娩にて出生。

生下時体重3,300g。Apgar score 10点（5分）。日齢1日より嘔吐が出現、白緑色の硬い便が排泄されていた。2日より腹部膨満、胆汁性嘔吐となった。洗腸で豆粒大の淡緑色便が少量得られたが、症状に改善がみられず、3日目に当院に紹介入院となった。

入院時、腹部は全体に膨隆し、腹壁上より拡張した腸の輪郭がみられた。腹部単純X線像は症例1と同様で、小腸ガスの増加と拡張像を認めたが、鏡面像は軽度であった。ガストログラフィン[®]の注腸造影（図4）では、microcolonと、回腸末端部の胎便によると思われる不整形の陰影欠損像が認められた。注腸造影後、大豆大の淡緑色便が3個みられたのみで、腹部膨満が続き、生後4日目に小腸閉鎖症の診断で手術を

施行した。

手術所見：回腸末端より25cmに caliber change を認め、ここより口側には非常に粘度の高い胎便が充満していた。また同部より口側15cmにわたって、腸管は暗褐色調を呈し、腸間膜が過長となり、その根部近くは肥厚し、索状物や黄白色調に硬くなった部分もみられた。一方、肛門側の腸管は細く、内腔に小豆大から大豆大の硬い胎便が詰まっており、特に回腸末端より10cmのところでは糞塊が透見できる程に壁が薄く、壊死様になっていた（図5）。手術では、この部の腸管を切除し、腸内腔を洗浄し、胎便を充分排除した後、Bishop-Koop型の腸瘻を造設した。また腸間膜が過長になっている部の腸管の色調に改善が得られないため、同部を切除し、端々吻合を行った。なお術中に虫垂の生検をして Hirschsprung 病を否定した。

術後経過：腸瘻からも肛門からもなかなか排便が得られず、腹部膨満が続き、ガストログラフィン[®]で注腸、洗腸を行った。術後8日目に排便が得られ、成分栄養と acetyl cysteine の経口投与を開始し、14日目より腹部膨満が消失した。その後、大量の下血を認め、経口投与を中断した時もあったが、経過は良好で、21日目より母乳を開始し、44日目に腸瘻を閉鎖した。以後も特に問題なく、哺乳、体重増加は良好で、術後65日、体重4,932gで退院した。この間 PFD テスト¹⁾を3回行ったが、7.7%（術後62日）が最高値であった。また生後6ヵ月時に汗の電解質を調べたが、Na 19.5mEq/l, Cl 20.1mEq/lと低値であり、

表1 Meconium diseaseの本邦報告例

出生体重 (g)	2,500	11例 (1)	
	1,500~2,500	5例 (2)	
	1,000~1,500	11例 (2)	
	~1,000	8例 (5)	
腹部単純X線	鏡面像	あり 5例 なし 24例	
	Microcolon	あり 31例 なし 3例	
治 療	洗腸等	11例	
	手術	腸瘻	17例 (7)
		端々吻合	8例 (2)
	再手術2例：tube ileostomy	3例	
その他	捻転	3例	
	腸間膜欠損	2例	
	腸回転異常	1例	

() 死亡例 自験例を除く45例

meconium disease と診断した。

III 考 察

胎便による腸閉塞症は、mucoviscidosis の一部分症として発生する meconium ileus がよく知られている。Mucoviscidosis は全身の外分泌腺の器質的あるいは機能的な異常を伴う全身性の疾患で、重症度はいろいろあるもの、疾患の特徴は①発汗試験で Cl が異常に高いことがまず第 1 で、次に②消化器系の異常、すなわち meconium ileus や消化吸収障害から大量頻回の悪臭を伴う脂肪便、栄養障害、③肺炎、気管支炎などの呼吸器系の合併症の存在、などである。一方、meconium ileus と同じ腹部所見を呈しながらも汗中の Cl が低く、全身の障害を伴わない疾患があることを 1938 年 Burger²⁾ がはじめて報告した。以後 1957 年 Emery³⁾、1965 年 Rickham と Boeckman⁴⁾ も報告し 1971 年には meconium disease という概念が Rickham⁵⁾ により提唱された。本症の本邦における最初の症例報告は福によりなされたと考えられ、古味⁶⁾ により紹介されており、以後本邦でも報告が散見されるようになった。

われわれが調べ得た本邦報告例⁶⁾⁻²³⁾ の概要を表 1 に示した。出生体重では、低出生体重児、極小未熟児、超未熟児が全体の 3 分の 2 をしめており、死亡例も多くみられている。

本症の病因としては定説はないが、胎便中の trypsin 活性の低下²⁴⁾、腸管での局所的水分平衡の異常³⁾、胎便中の mucopolysaccharide の異常重合²⁵⁾、糖・蛋白の吸収障害⁴⁾、腸間膜の血管障害²⁾、回腸での PAS 陽性粘液の多量分泌³⁾、膵外分泌腺の異常⁷⁾、腸管壁内神経系の未熟性²⁶⁾などがあげられている。われわれの症例においては、術中、腸間膜の血流障害を示唆する所見がみられた。また PFD テストは、膵外分泌形成異常を伴った本症の報告例⁷⁾があったため施行したが、2 例とも低値であった。PFD テストの小児の正常値は成人より低く¹⁾²⁷⁾、生後 2 カ月未満で約 20%、1 歳未満で約 50% と考えられる。われわれの症例は、手術後であり、腸管での吸収の問題もあるが、便

性もよく、体重の増加が順調に得られている時期に行っており、膵外分泌能の低下が強く疑われた。

診断は、胎便排泄の遅延、腹部膨満、胆汁性嘔吐などの臨床症状と、腹部単純 X 線での鏡面像を欠いた拡張した小腸ガス像、注腸造影での microcolon 像などによってなされるが、小腸閉鎖、entire colon aganglionosis との鑑別は必ずしも容易ではない場合がある。本邦報告例においても、鏡面像を呈した例が 29 例中 5 例あり、また microcolon を呈さなかった例が 34 例中 3 例あった。

治療では、本邦報告例で、洗腸等の保存的治療により、11 例が治癒している。一方、手術例は 28 例中 9 例が死亡しているが、腸瘻造設 17 例中の死亡 7 例には穿孔例 2 例を含む超未熟児が 4 例、極小未熟児が 1 例含まれており、治療に抵抗する大きな要素になっている。また端々吻合例 8 例中 2 例が再手術で tube ileostomy を受けている。自験例のように術後粘調な便性が続く症例が他にも少なからず報告されており、手術では何等かの減圧術を考慮する必要があると思われる。

本症における手術時の他の腹部所見について論じられている文献は少ないが、自験例を含む本邦報告例をみると腸捻転が 3 例、腸間膜欠損が 3 例、腸回転異常が 2 例に認められており、この内腸捻転は meconium ileus 同様、胎生期に起こっていれば小腸閉鎖や胎便性腹膜炎の原因のひとつになりうると思われる。また保存的に治療した場合、後に腸間膜欠損、腸回転異常から再度腸閉塞の症状が出現する可能性もあり、十分な術後の観察が必要と考える。

おわりに

Meconium disease と考えられた新生児の 2 例を報告し、若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は第 52 回日本臨床外科医学会総会 (1990 年 11 月 14 日、東京) において寺田が発表した。本学会の抄録中 3 例目は小腸閉鎖症例であり本症として不適当と考え、発表において除外させていただいたことを報告しお詫びする。

文 献

- 1) 住山景一郎, 小林昌和, 重里敏子, 村上明子, 平山健二, 上原俊宏, 石井 侃, 小池通夫, 柏井洋臣: N-benzoyl-L-tyrosyl-p-aminobenzoic acid (PFD) 経口投与方法による膵外分泌能検査の小児への応用. 小児科臨床, 34: 2385-2390, 1981
- 2) Burger, P.: Cas rare d'ileus du nouveaune par epaississement du meconium. Gynecol Obstetr, 37: 176-177,

1938

- 3) Emery, J. L.: Abnormalities in meconium of the foetus and newborn. Arch Dis Child, 32: 17-21, 1957
- 4) Rickham, P. P. and Boeckman, C. R.: Neonatal meconium obstruction in the absence of mucoviscidosis. Am J Surg, 109: 173-177, 1965
- 5) Rickham, P. P.: Intraluminal intestinal obstruction. Prog Pediatr Surg, 2: 73-82, 1971
- 6) 古味信彦: Meconium ileus. 外科診療, 13: 803-810, 1971
- 7) 猪原則行, 石田治雄, 林 奂, 初鹿野浩: 腸外分泌形成異常を伴った Meconium disease の 1 症例. 小児外科, 18: 1119-1125, 1986
- 8) 田中和彦, 杉本 徹, 後藤素子, 天野忠温, 水上公直, 永井崇夫: 胎便による腸閉塞 Meconium disease の 2 例. 小児外科, 9: 1075-1083, 1977
- 9) Shigemoto, H., Endo, S., Isomoto, T., Sano, K. and Taguchi, K.: Neonatal meconium obstruction in the ileum without mucoviscidosis. J Pediatr Surg, 13: 475-479, 1978
- 10) 木下 讓, 糸数俊秀, 湯川勝託, 神波澄幸, 加藤大司: 新生児胎便性腸閉鎖症の一治検例. 鳥取医学雑誌, 10: 115-117, 1977
- 11) 中村資朗, 永原 暹, 藤野俊夫, 河田晴子, 山本泰雄, 頼 明信, 新見良明: Meconium ileus without mucoviscidosis. 小児内科, 13: 170-171, 1981
- 12) 篠原義文, 岡部郁夫, 森田 健, 東 義治, 石原通臣, 金子十郎: Meconium disease (mucoviscidosis を伴わない meconium ileus) と考えられる新生児の 3 例. 日小外会誌, 18: 393-401, 1982
- 13) 梶原真人, 岩尾初雄, 近藤 乾: 胎便による腸閉塞症. 小児科臨床, 38: 1643, 1985
- 14) 能勢勝義, 岡本英三, 豊坂昭弘, 植木重文, 岡空達夫, 連 利博, 関 保平: Meconium ileus without mucoviscidosis 4 例の臨床病理学的検討. 日小外会誌, 21: 247, 1985
- 15) 越智五平, 堀 隆, 久保幸一郎, 川上 義, 赤松 洋: Meconium disease と考えられた極小未熟児の 1 例. 日小外会誌, 21: 720-725, 1985
- 16) 堀 哲夫, 河原崎秀雄, 宇野武治, 石川美保, 原田幸雄, 吉村敬三: Meconium disease と考えられた超未熟児の 1 例. 日小外会誌, 22: 1301-1302, 1986
- 17) 中谷行雄, 佐々木佳郎, 後藤彰子: 剖検にて Meconium disease が疑われた超未熟児の 1 例. こども医療センター医学誌, 16: 191, 1987
- 18) 北川博昭, 中田幸之助, 金 義孝, 石川 操, 藤岡照裕, 江並朝猛, 桑原幹夫, 川口文夫, 野口輝彦, 有本寛, 堀内 勁: Meconium disease の臨床的検討. 日本新生児学会雑誌, 24: 343-344, 1988
- 19) 西澤善樹, 川上 義, 関 和男, 西巻 滋, 与田仁志, 赤松 洋: Meconium disease と考えられた超未熟児の 1 例. 日本小児科学会雑誌, 92: 1463-1464, 1988
- 20) 梅田隆司, 長屋昌宏, 津田峰行, 飯尾賢治: Meconium disease の臨床的検討. 日臨外会誌, 49: 254-259, 1988
- 21) 藤本隆夫, 横山清七, 添田仁一, 三富利夫: Meconium disease によると思われる腸穿孔例の検討. 日小外会誌, 26: 800-807, 1990
- 22) 吉田禎宏, 松崎孝世, 林 尚彦, 藤野良三, 鈴江純史, 田中 弘, 湯浅安人, 栗飯原良造: Meconium disease の 1 未熟児例. 小児外科, 22: 930-934, 1990
- 23) 河崎正裕, 尾内一信, 倉重 弘, 植田直樹, 木藤信之, 金原洋治: Meconium disease の超未熟児例. 日小外会誌, 27: 1171-1175, 1991
- 24) Clatworthy, J. H. W., Howard, W. H. R. and Lloyd, J.: The meconium plug syndrome. Surgery, 39: 131-142, 1956
- 25) 山内逸郎, 五十嵐郁子: 胎便栓症候群の 1 例. 小児科臨床, 13: 716, 1960
- 26) 豊坂昭弘: Hirschsprung 病類縁疾患. 日本小児外科学会教育委員会編, 基本小児外科学, 第 1 版, pp.397-413, 金原出版, 東京, 1989
- 27) Sacher, M., Kobsa, A. and Shmerling, D. H.: PABA screening test for exocrine pancreatic function in infants and children. Arch Dis Child, 53: 639-641, 1978

(4. 4. 2 受稿)