第 74 回直腸肛門奇形研究会

プログラム・抄録集

会長： 河野美幸
金沢医科大学　小児外科

会期： 平成 29 年 10 月 26 日（木）
会場： 川崎市産業振興会館
第三会場（9 階　第三研修室）

第 74 回直腸肛門奇形研究会

会　長　挨　拶

会長：　河野美幸
金沢医科大学　小児外科

ご挨拶

歴史と伝統ある第 74 回直腸肛門奇形研究会をお世話させていただくことになり、大変光栄に存じます。

応募いただきました演題総数は 30 題にも上りました。最初に、多くの演題を応募いただきました皆様に心より感謝申し上げます。

応募いただきました内容を見ますと１演題１演題がすべて重要な問題点を含んでいる内容となっており、診断治療を通してまだまだ掘り下げていかなければならない分野であると感じております。しかしながら多数の演題のため十分な発表時間が設けられませんでしたことをお詫び申し上げなければなりません。

要望演題といたしました『中間位鎖肛に対する術式の選択とその結果』については８演題もの応募をいただきました。鎖肛根治術に腹腔鏡下手術が導入され 15 年以上が経過しますが、現在もなお中間位鎖肛に対する腹腔鏡手術の適応については議論のあるところであります。本研究会事務局の御協力をいただき、本研究会の集計よりこれまでの中間位鎖肛の治療の推移を報告いただいた上で、討論いただき、今後の手術術式を選択する上で皆様の役立つ内容になることを期待しております。

直腸肛門奇形に関する知見を、参加された皆様が共に共有し、理解をさらに深められる有意義な研究会になりますよう宜しくお願い申し上げます。

プログラム

2017 年 10 月 26 日　（木）　第三会場（9 階 第三研修室）

開会の辞　10：00～10：03

会長：河野　美幸（金沢医科大学　小児外科）

一般演題 1　［ 術前診断・診断困難例 ］　10：03～10：29

（質問 2 分）

座長：藤代　準（東京大学　医学部附属病院　小児外科）

1-1　直腸肛門奇形(鎖肛) 病型診断における倒立位 X線撮像と超音波検査の検討（4分）

沓掛 真衣

成育医療研究センター　小児外科

1-2　臀部異常を伴い診断に難渋した肛門狭窄の 1 例（3 分）

林 健太郎

東京大学 医学部附属病院 小児外科

1-3　直腸尿道瘻・直腸会陰皮膚瘻を合併した分類不能型直腸肛門奇形の１例（3分）

星 玲奈

日本大学　医学部　小児外科

1-4　高位型を示した直腸皮膚瘻の 1 例（3 分）

中山 智理

昭和大学 医学部 外科学講座 小児外科学部門

1-5　中間位型と判断した低位鎖肛(anopenile cutaneous fistula?)の1例（3分）

小梛地洋

東邦大学医療センター大森病院　小児外科

一般演題 2　［根治術式について］　10：29～10：52

（質問 2 分）

座長：福本　弘二（静岡県立こども病院　小児外科）

2-1　小型で安価な神経刺激装置を使用した腹腔鏡下高位鎖肛根治術（続報）（4分）

青井 重善

京都府立医科大学　小児外科

2-2　当科における高位鎖肛症例の治療成績（4 分）

高橋 俊明

静岡県立こども病院 小児外科

2-3　直腸皮膚瘻に対して後方矢状切開直腸肛門形成術（ PSARP ）を施行した1例（3分）

三上 敬文

順天堂大学 医学部附属浦安病院 小児外科

2-4　Anal agenesis without fistulaに対する前方会陰式肛門形成術の経験（4分）

下島 直樹

東京都立小児総合医療センター外科

休　憩　10：52～11：05

一般演題 3　［術後合併症］　11：05～11：31

（質問 2 分）

座長：青井 重善（京都府立医科大学 小児外科）

3-1　鎖肛術後、卵管留水腫により膣脱、直腸脱を来たした 1 例（3 分）

大山 俊之

新潟大学　大学院　小児外科

3-2　鎖肛術後の高度便秘症を呈した 2 例（3 分）

八木 誠

近畿大学　医学部　外科学教室　小児外科部門

3-3　S 状結腸切除が著効した低位鎖肛術後高度便秘症の 1 例（3 分）

小野 健太郎

筑波大学　医学医療系　小児外科

3-4　腹腔鏡下中間位鎖肛術後の尿道後部憩室に対して経尿道的レーザー焼灼を行なった2例（3分）

城田 千代栄

名古屋大学大学院医学系研究科　小児外科学

3-5　当院における中間位鎖肛・再手術症例の検討（4 分）

清水 隆弘

東海大学　医学部　外科学系　小児外科学

一般演題４　［ その他１］　11：31～11：51

（質問２ 分）

座長：古賀　寛之（順天堂大学医学部附属順天堂医院　小児外科）

4-1　肛門挙筋群レベルまで直腸縫合固定を行った直腸脱の１例（3 分）

山田 舜介

順天堂大学医学部附属順天堂医院 小児外科

4-2　治療に難渋している脳性麻痺・発達障害を合併した総排泄腔遺残症の１例（3分）

平林 健

弘前大学 医学部 小児外科学講座

4-3　尿性・胎便性腹水による胎便性腹膜炎を認めた総排泄腔遺残の 1例（3分）

長野 由佳

三重大学　消化管・小児外科

4-4　学童期に肛門形成術を行った Currarino症候群の１例（3分）

河野 淳

飯塚病院　小児外科

一般演題５　［その他　２］　11：51～12：13

（質問２ 分）

座長：下島　直樹（東京都立小児総合医療センター外科）

5-1　羊水過小による肺低形成を伴った Type2 congenital pouch colon の１例（3分）

森 禎三郎

慶應義塾大学　小児外科

5-2　直腸肛門奇形におけるＳ状結腸離断型人工肛門の意義（4 分）

中原 康雄

国立病院機構岡山医療センター

5-3　根治術前に人工肛門造設をおこなった10歳以上のHirschsprung病3例の検討（3分）

矢崎 悠太

順天堂大学医学部附属順天堂医院

5-4　ヒルシュスプルング病マウスモデルにおける肛門管の感覚神経と Anorectal line（4分）

武田 昌寛

順天堂大学　医学部　小児外科・小児泌尿生殖器外科

ランチョンセミナー4　12：30～13：30

施設代表者会議　13：30～14：00

要望演題　［中間位鎖肛に対する術式の選択とその結果］　14：00～15：30

（発表 5 分・質問 3 分）

座長：　米倉 竹夫（近畿大学奈良病院　小児外科）

内田　恵一（三重大学　消化管・小児外科）

中間位鎖肛に対する術式の変遷　－研究会の集計より

直腸肛門奇形事務局　（3 分）

腹腔鏡下根治術の比較

A-1　中間位鎖肛に対する腹腔鏡補助下肛門形成術：仙骨会陰式造肛術との比較

石丸 哲也

埼玉県立小児医療センター　外科

A-2　当施設における男児中間位鎖肛に対する PSARP と LAARP の検討

奈良 啓悟

大阪母子医療センター　小児外科

非腹腔鏡手術の術式の比較

A-3　当科における中間位鎖肛に対する術式の変遷および予後についての比較検討

小林 真史

千葉大学　大学院　医学研究院　小児外科学

A-4　当科における中間位鎖肛の検討

二科 オリエ

東北大学　小児外科

術式の工夫・結果

A-5　中間位鎖肛に対する術式の選択とその結果

里見 美和

金沢医科大学　小児外科学

A-6　当科における中間位鎖肛に対するASARPの術式と有用性

東舘 成希

久留米大学　医学部　外科学講座小児外科部門

A-7　当科における男児中間位鎖肛に対する PSARP の術後排便機能に関する検討

小幡 聡

九州大学大学院医学研究院　小児外科学分野

A-8　腹腔鏡下中間位鎖肛根治術に対する適応と瘻孔処理の工夫

山田 耕嗣

鹿児島大学学術研究院　医歯学域医学系　小児外科学分野

登録症例集計および症例検討　15：30～16:30

閉会の辞・次期会長挨拶　16：30～16：33

会　　長：河野 美幸（金沢医科大学 小児外科）

次期会長：米倉 竹夫（近畿大学奈良病院　小児外科）

要　望　演　題

A-1　中間位鎖肛に対する腹腔鏡補助下肛門形成術：仙骨会陰式造肛術との比較

埼玉県立小児医療センター　外科[1]、名古屋大学大学院　小児外科学[2]

石丸　哲也[1)]、川嶋　寛[1)]、鈴木　啓介[1)]、高見　尚平[1)]、柿原　知[1)]、加藤　怜子[1)]、青山　統寛[1)]、内田　広夫[2)]、岩中督[1)]

【目的】中間位鎖肛に対する腹腔鏡補助下根治術（L 群）の術後排便機能および合併症を仙骨会陰式造肛術（S 群）と比較検討する。

【方法】開院（1983 年 4 月）以降、当院で根治術を行った中間位鎖肛症例の診療録を後方視的に調査し解析した。

【結果】L 群 12 例（球部尿道瘻 7 例、無瘻孔 4 例、腟瘻 1 例）と S 群 14 例（球部尿道瘻 11 例、無瘻孔 3 例）の手術月齢、体重、手術時間、出血量中央値は、6 ヵ月と 6.5 ヵ月、6750g と 7023g、230 分と 184 分、8mL と 18.5mL であり、手術時間（$p < 0.01$）と出血量（$p = 0.03$）に有意差を認めた。L 群と S 群の術後 3、5、7 年目における直腸肛門奇形研究会排便スコア合計点は 4、5、4 点と 4、5、6 点であり有意差はなかった。粘膜脱が L 群 6 例（50%）と S 群 4 例（29%）に認められたが有意差はなく（$p = 0.42$）、肛門狭窄や縫合不全はなかった。

【考察】L 群の術後排便機能および合併症は S 群と同等だったが、粘膜脱が多い傾向にあり今後の検討課題である。

A-2　当施設における男児中間位鎖肛に対する PSARP と LAARP の検討

大阪母子医療センター　小児外科

奈良　啓悟、南園　京子、當山　千巖、前川　昌平、井深　奏司、正畠　和典、曹　英樹、臼井　規朗

（はじめに）男児中間位鎖肛に対して、当施設で根治術を施行した PSARP と LAARP の比較検討を行った。（対象と方法）対象は、2000 年から 2017 年までの中間位鎖肛 30 例。術後の排便機能評価には当研究会のスコア（満点 8）を使用した。（結果）病型は、bulbar/anal agenesis がそれぞれ 21/9 例であった。術式は PSARP、LAARP がそれぞれ 25/5 例で、平均手術時間は、3.2/5.7 時間（P=0.006）であった。合併症は、尿道損傷が PSARP/LAARP で 3/0 例、遺残瘻孔による憩室形成が 0/2 例であった。ダウン症を除いて術後 5 年以上経過観察できた症例は 16（13/3）例で、合計の平均スコアは 6.2/6.7 点（P=0.35）であった。（結論）中間位鎖肛においては、LAARP は PSARP に比べて術後排便機能に優れているとはいえず、瘻孔処理に難渋して遺残を生じる可能性があるため、現在は PSARP を第一選択としている。

A-3　当科における中間位鎖肛に対する術式の変遷および予後についての比較検討

千葉大学　大学院　医学研究院　小児外科学

小林　真史、齋藤　武、照井　慶太、中田　光政、小松　秀吾、柴田　涼平、原田　和明、西村　雄宏、勝海　大輔、吉田　英生

【背景と目的】中間位鎖肛に対する術式として，当科では 1976～1994 年までは Stephens (SP)法を 1995 年以降は PSARP (PS)法を施行してきた。今回術後 QOL を評価した.【対象と方法】対象は 1976～2016年までに根治術を施行した中間位鎖肛 28 例.内訳はSP 法 20 例 (rectobulbar 14, anal agenesis 3, rectocutaneous 2, rectovaginal 1),PS 法 8 例(rectobulbar 8)であった. 評価項目として，粘膜脱の有無と排便機能に着目した. 排便機能は直腸肛門奇形研究会の評価法に基づき術後 5-8 年のそれを評価した.【結果】術後粘膜脱をきたしたのは SP 法 9 例 64%, PS 法 1 例 14% (p=0.06)であった. 排便機能は SP 法 4.2 点,PS 法 6.4 点で(p=0.02), PS 法で優れていた. 細目別では便意が SP 法 1.2 点, PS 法 2.0 点(p=0.03), 失禁が SP 法 2.5 点, PS 法 3.6 点(p=0.03)であった.【まとめ】Stephens 法に比し, PSARP 法は鎖肛患児の QOL を向上させる術式と考えられる.

A-4　当科における中間位鎖肛の検討

東北大学　小児外科

二科　オリエ、和田　基、佐々木　英之、風間　理郎、田中　拡、工藤　博典、中村恵美、山木　聡史、仁尾　正記

【目的】中間位鎖肛に対して、当科では 1987 年以降 posterior sagittal anorectoplasty (PSARP)を標準術式としており、さらに 1993 年からは新生児期一期的手術を第一選択としている。PSARP 後の排便機能に影響を与える因子を解析した。【対象と方法】2013 年までに PSARP が施行され、排便機能評価が行われた中間位鎖肛 25 例を対象に、4 歳時の排便スコア 5 点以上の高値群 (17 例) と 4 点以下の低値群 (8 例) に分け、種々の因子の影響を検討した。【結果】女児でスコアが高かった (p=0.0101) が、術式、年代、手術時年齢、瘻孔の有無、染色体異常や脊椎病変の有無では有意差はなかった。【結論】女児の成績が良好であった以外に有意な因子は見出されなかった。現行の新生児一期的 PSARP は乳児期手術と機能的に遜色なく、ストーマを要せず、QOL や合併症の面で有用な方法と考えられた。

A-5　中間位鎖肛に対する術式の選択とその結果

金沢医科大学　小児外科学

里見　美和、中村　清邦、城之前　翼、桑原　強、安井　良僚、河野　美幸

【はじめに】教室では中間位鎖肛に対する仙骨会陰式肛門形成術を 1998 年よりは pull-through 直腸周囲の神経損傷の軽減を意図した拡大会陰式根治術＋Nixson 肛門形成術を採用し主に行ってきた。術式の要点および術後排便機能を比較して報告する。【対象と方法】1990 年から 2016 年の 26 年間に中間位鎖肛の診断で根治術を施行した患児を対象とし、術式と合併症や排便スコアの結果について検討した。【結果】仙骨会陰式肛門形成術が 8 例、拡大会陰式肛門形成術が 11 例であった。合併症としてダウン症 1 例、心奇形 4 例、男性子宮 2 例であった。術後平均 4.8 年後（3 年-10 年半）の時点での Clinical Score の平均が仙骨会陰式肛門形成術では 7 点、拡大会陰式肛門形成術では 6 点となっている。【まとめ】長期予後が明らかになってきており、過去の症例を検討することで今後の術式の選択に活かせるようにしたい。

A-6　当科における中間位鎖肛に対する ASARP の術式と有用性

久留米大学　医学部　外科学講座小児外科部門[1]、久留米大学病院医療安全部[2]

東舘　成希[1)]、浅桐　公男[1)]、深堀　優[1)]、石井　信二[1)]、七種　伸行[1)]、橋詰　直樹[1)]、吉田　索[1)]、升井　大介[1)]、坂本　早季[1)]、鶴久　士保利[1)]、田中　芳明[2)]、八木　実[1)]

［はじめに］ 中間位鎖肛に対し当科では anterior sagittal anorectoplasty(ASARP) を標準術式としている。今回当科で施行した中間位鎖肛に対する ASARP の術式と有用性について報告する。［対象と検討項目］当科で ASARP を施行した中間位鎖肛 6 例（男児の直腸尿道瘻 5 例、女児の肛門無形性無瘻孔型 1 例）について、肛門部 dimple から直腸壁までの距離、手術内容、術後合併症、排便機能について検討した。［結果］肛門部 dimple から直腸壁までの距離は自然な状態で 27-32mm、圧迫すると 10-20mm であった。手術時間は 170-237min、出血は 10-76g。術中合併症はなかったが、1 例で術後創感染を認めた。人工肛門を閉鎖した症例の排便コントロールは良好である。［考察］中間位鎖肛でも直腸壁までの到達は容易で、直視下で触知しながら瘻孔処理が可能である。muscle complex を損傷することなく直腸を確実に筋群の中央に通すことが可能な ASARP は中間位鎖肛の術式として有用と考えられる。

A-7　当科における男児中間位鎖肛に対する PSARP の術後排便機能に関する検討

九州大学大学院医学研究院　小児外科学分野

小幡　聡、伊崎　智子、三好　きな、江角元史郎、宗崎　良太、松浦　俊治、木下　義晶、田口　智章

はじめに:当科では男児中間位鎖肛に対する根治術として Posterior sagittal anorectoplasty (PSARP)を選択している.術後長期経過後の排便機能について後方視的検討を行った.**対象**:2006-2013 年での男児 PSARP 施行例の排便機能を術後 4 年経過時に評価した.**結果**:症例は 7 例(直腸尿道球部瘻 RB3 例、無瘻孔 AA４例) で全例ダウン症や仙骨奇形の合併はなかった.根治術時合併症は RB1 例 (肛門吻合部の創一部離開),AA2 例(肛門からの粘膜一部脱落 1 例,皮下膿瘍 1 例) で全例保存的加療で軽快した.術後 4 年経過時の各スコアの全体平均は便秘 3.4,失禁 3.7,汚染 1.6,便意 1.9,合計 6.7 であった.RB では合計平均が 7.7 と高スコアであったが,AA では合計平均が 6 と低く根治術時合併症があった AA 症例は便秘あるいは失禁スコアがやや低かった.**結語**:PSARP は術後長期経過後の排便機能に対して満足のいく結果を示したが,術後合併症によっては便秘または失禁が遷延する可能性がある.

A-8　腹腔鏡下中間位鎖肛根治術に対する適応と瘻孔処理の工夫

鹿児島大学学術研究院　医歯学域医学系　小児外科学分野

山田　耕嗣、川野　正人、矢野　圭輔、大西　峻、山田　和歌、桝屋　隆太、川野　孝文、町頭　成郎、中目　和彦、向井　基、加治　建、家入　里志

当科では 2015 年以降高位及び中間位鎖肛に対し、腹腔鏡下鎖肛根治術を導入している。中間位鎖肛に対する腹腔鏡下根治術の適応と瘻孔処理の工夫を報告する。

症例はいずれも 6 ヶ月男児、病型は直腸球部尿道瘻であった。適応は、尿道後壁と直腸後壁が接しておらず、垂直に近い角度で瘻孔が開口する型とした。瘻孔切離は、膀胱鏡観察下に刺通結紮及びヘモロックを併用、尿道狭窄を回避しつつ遺残無く切離し得た。muscle complex の同定は剥離過程で肉眼的に比較的容易だが、腹腔内から電気刺激装置を用いて収縮の中心を同定し、外肛門括約筋を体表から確認、pull through 経路を決定した。術後それぞれ 5 ヶ月、9 ヶ月経過しているが、尿道狭窄及び憩室形成は生じていない。

男児小骨盤腔の狭小空間では刺通結紮による瘻孔処理は遺残も含めて不確実になる可能性があるが、膀胱鏡下のヘモロック処理で過不足なく安全確実な処理が可能である。

一　般　演　題

1-1　直腸肛門奇形（鎖肛）病型診断における倒立位X線撮像と超音波検査の検討

成育医療研究センター　小児外科

沓掛　真衣、藤野　明浩、後藤　倫子、朝長　高太郎、小川　雄大、大野　通暢、渡邊　稔彦、田原　和典、菱木　知郎、金森豊

外瘻孔のない鎖肛では低位と中間位以上との鑑別が出生後早期の治療方針決定に必要である。倒立位 X 線撮像と超音波検査が用いられるが、その正確性についてはまだ議論がある。我々は自験例にて出生時病型診断の正診率を検討した。2002 年 3 月から 2017 年 3 月までに、当院で倒立位 X 線撮像と超音波検査が施行された鎖肛 16 症例を対象に 1 倒立位 X 線撮像と 2 超音波検査での直腸盲端・肛門窩皮膚距離の測定、3 単純 X 線側面像での P - C 線と I 線の距離の測定と超音波検査での直腸盲端と P-C 線間距離の測定の 3 つ評価方法の低位・中間位以上の正診率を後方視的に検討した。結果、正診率はそれぞれ 1：87.5%、2：62.5%、3：87.5%であった。超音波検査のみでは、正診率が低かったが、原因として手法のばらつきが問題と思われた。いずれも手法を完全に一定にしての評価が肝要であり、現時点では超音波検査と側面像 X 線撮像と組み合わせて診断することが望ましいと考えられた。

1-2　臀部異常を伴い診断に難渋した肛門狭窄の 1 例

東京大学　医学部附属病院　小児外科

林　健太郎、藤代　準、高本　尚弘、竹添豊志子、魚谷　千都絵、星野　論子、渡邊美穂、鈴木　完

症例は在胎 41 週 3014g で出生した男児。胎児期に異常は指摘されず、出生後に臀部奇形を指摘され、月齢 1 に当科紹介となった。右臀部が肥大し、左側に偏倚した臀裂に狭窄した肛門、肥大した右臀部に 2 つの隆起性病変、会陰正中に瘻孔を認め、臀部以外に異常は認めなかった。腹部Ｘ線検査では腸管拡張はなく、瘻孔造影で瘻孔は約 4cm で盲端であった。排便は肛門から認め、MRI 検査では直腸、肛門は筋群の中心を通っていた。

直腸診の結果肛門狭窄は肛門ブジーにて治療する方針とし、月齢 6 に臀部腫瘤と瘻孔の切除術のみ施行した。術中の筋刺激装置による観察では肛門の左側のみに外肛門括約筋の収縮を認め、瘻孔周囲やほかの部位には刺激による収縮を認めなかった。切除した臀部腫瘤と瘻孔壁の病理所見では平滑筋組織が含まれ組織学的に副陰嚢の診断となった。

術後 1 か月現在、肛門はヘガールブジー#16 が挿入可能で、排便状態も良好である。

1-3　直腸尿道瘻・直腸会陰皮膚瘻を合併した分類不能型直腸肛門奇形の１例

日本大学　医学部　小児外科

星　玲奈、大橋　研介、菅原　大樹、山岡　敏、石塚　悦昭、橋本　真、吉澤　信輔、後藤　俊平、金田　英秀、古屋　武史、上原　秀一郎、越永　従道

症例は在胎 36 週 2498g で出生した男児。肛門欠如を主訴に当院へ搬送された。初診時、陰嚢縫線に皮膚瘻を認めた。尿中メコニウム検査が陽性だったため直腸・尿道造影を行なったところ、直腸球部尿道瘻（内瘻）と直腸会陰皮膚瘻（外瘻）を認めた。日齢 0 に人工肛門を造設し、月齢 8 に直腸肛門形成術を行なった。手術はまず膀胱鏡下に尿道瘻へガイドワイヤーを留置し、体位変換の後、PSARP(Pena 手術)に準じて行なった。尿道と直腸前壁の共通壁が長く尿道損傷が危惧されたため、直腸前壁を短冊状に切開し尿道損傷を回避した。術後は尿道皮膚瘻を合併したが約 2 週間の保存的治療で治癒した。内瘻と外瘻を合併した直腸肛門奇形は稀であり文献的考察を含め報告する。

1-4　高位型を示した直腸皮膚瘻の１例

昭和大学　医学部　外科学講座　小児外科学部門

中山　智理、土岐　彰、千葉　正博、杉山　彰英、入江　理絵、大澤　俊亮、渡井　有、川野　晋也

症例は、在胎 41 週 5 日、3,310g で出生した男児で、出生後に肛門の確認ができず、当院に紹介転院となった。来院時、肛門窩と思われる陥凹にごく少量の胎便の付着を認めた。肛門の外観からは低位型が疑われた。日齢 1 に行った倒立位レ線撮影では直腸盲端のガス像が PC 線より頭側であった。その後も胎便の肛門窩への付着は認められた。日齢 2 に再度、倒立位レ線撮影を行ったが、直腸盲端のガス像は前日の位置より先進していなかった。肛門窩の瘻孔も確認できず、術前診断で低位と断定できなかったため、日齢 3 に人工肛門を造設した。術後の造影では倒立位レ線撮影で盲端となっていたところから肛門窩に続く長い瘻管が認められた。月齢 5 に腹仙骨会陰式肛門形成術を施行し、月齢 9 に人工肛門を閉鎖した。現在、月齢 11 で、自排便の回数は 5-6 回/日で便性もよく経過は良好である。本症例の病型診断について検討したい。

1-5　中間位型と判断した低位鎖肛（anopenile cutaneous fistula ?）の１例

東邦大学医療センター大森病院　小児外科

小椰地洋、長島峻介、島田脩平、山崎信人、酒井正人、黒岩　実

男児の低位型鎖肛では稀に陰茎方向に長い瘻管を有し皮膚や前部尿道に開口する事があるが、我々は前者の症例を経験した。

【症例】日齢０の男児。主訴は二分陰嚢と肛門欠如である。陰部外観は胎便透見や瘻管はなく、尿道造影では正常であった。倒立撮影像で直腸盲端はＩ線を超え皮膚より14mm だが、US 上は 5mm 程で盲端は前方に屈曲していた。低位型の確信が持てずＳ状結腸瘻を造設した。生後３月頃よりオムツに便様粘液が付着するため、腸瘻・尿道造影を行った所、尿道に沿い亀頭部皮膚に開口する瘻管所見が得られた（瘻孔は確認不可)。生後 5 月で前方会陰式肛門形成術を施行した。内視鏡に guide wire を併用し初めて瘻孔を確認した。

【考察】本例では盲端穿刺・造影にて病型の判定は可能だが、瘻管の診断は困難であったと考える。肛門形成時には尿道に近接した瘻管の同定、処理に guide wire が極めて有用であった。

2-1　小型で安価な神経刺激装置を使用した腹腔鏡下高位鎖肛根治術（続報）

京都府立医科大学　小児外科

青井　重善、古川　泰三、東　真弓、坂井宏平、文野　誠久、木村　修、田尻　達郎

【始めに】第 32 回日本小児内視鏡外科・手術手技研究会で当科が発表した小型で安価な神経刺激装置は,現在,若干の改良を加えて鎖肛手術に加え骨盤腫瘍摘除など直腸肛門領域の手術でも全例使用している.腹腔鏡下高位鎖肛根治術では刺激法の改良(以下本法)で,骨盤底を刺激しながらの pull through が可能になった.本法による最近の症例を供覧する.【症例】11 か月男児.高位鎖肛（直腸前立腺部尿道瘻）.VATER 連合（C 型食道閉鎖・胃食道逆流・橈骨欠損・椎体病変・骨盤底筋群発達不良）に根治術を計画した.本法で体内外の収縮中心を明らかにして根治術を行った.術後１ヶ月で人工肛門閉鎖・噴門形成術行い,日々の定期浣腸とブジーを継続し排便訓練中だが,造影上も良好な直腸肛門形成状態がえられている.【結果】本法は術野の妨げにならず発達不良例でも中心を明らかにして手術を施行できる.今後長期の排便機能成績を集積してゆく予定である.

2-2　当科における高位鎖肛症例の治療成績

静岡県立こども病院　小児外科

高橋　俊明、福本　弘二、矢本　真也、大山　慧、関岡　明憲、野村　明芳、山田　豊、漆原　直人

当科ではこれまで 22 例の高位鎖肛症例を経験し、仙骨（腹）会陰式鎖肛根治術:S(A)P 法を 17 例に、また 2007 年以降導入した腹腔鏡下会陰補助切開併用肛門形成術:L 法を 5 例に施行している。これらを対象とし、直腸肛門奇形術後排便機能の臨床評価法に基づいて長期治療成績を検討した。病型は直腸尿道瘻 14 例、直腸膀胱瘻 5 例、直腸膣瘻 3 例。手術年齢 9.4±3.9 ヶ月、手術時体重 8.0±0.8kg、手術時間 392.1±101.6 時間、出血 70.1±70.2g であった。術後合併症は、直腸粘膜脱 19 例、腸閉塞 5 例、肛門括約筋不全 1 例、直腸膀胱瘻 1 例であった。排便機能のスコアは、年齢とともに総得点の上昇が認められ、得点内容では各年齢層で便秘の得点が失禁の得点より有意に高かった。

本症における S(A)P 法後の長期排便機能成績は良好である。近年導入している L 法で、術後合併症である腸閉塞は改善が見込まれると考える。

2-3　直腸皮膚瘻に対して後方矢状切開直腸肛門形成術（PSARP）を施行した 1 例

順天堂大学　医学部附属浦安病院　小児外科[1]、順天堂大学　医学部附属浦安病院　小児科[2]

三上　敬文[1)]、小笠原　有紀[1)]、西崎　直人[2)]、大日方　薫[2)]、岡崎　任晴[1)]

稀な直腸皮膚瘻を有する男児鎖肛に対し PSARP を施行した症例を経験したので報告する。症例は 37 週 5 日予定帝王切開にて出生した男児。出生時体重 2960 g 、Apgar score 9 点（1 分）/ 10 点(5 分)。出生時、肛門の開口なく胎便も透見できなかった。出生 20 時間後の倒立位撮影で中間位鎖肛と診断、横行結腸人工肛門造設術を施行した。合併奇形はなかった。日齢 5 に肛門付近の胎便付着を認めたため、人工肛門から注腸造影を施行したところ Ⅰ 線にある直腸下端よりきわめて細い瘻孔が確認できた。体重増加を待ち、4 ヶ月時に PSARP を施行した。術中、良好な視野で直腸下端から瘻孔全長にわたる剥離が可能で、瘻孔を切除し直腸を pull － through した。9 ヶ月時に人工肛門を閉鎖し、現在まで術後経過は良好である。

2-4　Anal agenesis without fistula に対する前方会陰式肛門形成術の経験

東京都立小児総合医療センター外科

下島　直樹、内田　豪気、春松　敏夫、石岡　茂樹、加藤　源俊、富田　紘史、下高原　昭廣、廣部　誠一

我々の施設では Anal agenesis without fistula に対して、通常 PSARP を施行しているが、直腸盲端が MRI で恥骨直腸筋下端付近に終わっていても、造影で直腸盲端が I 線を越えるほど下行する症例には前方会陰式肛門形成術を施行している。手術はまず、会陰部前方を縦に皮膚切開し、vertical fiber の左右、前後の正中を確認するため浅層のみ切開して確認を行う。続いて vertical fiber 前縁の会陰腱中心の視野を出し、内視鏡の送気と光により直腸盲端を確認する。盲端は通常、恥骨直腸筋の前方下端に位置して確認しにくいが内視鏡を併用することで同定しやすくなる。直腸盲端周囲を必要最小限の剥離で授動し、恥骨直腸筋の下端から深部括約筋の中央にかけてトンネリングを行い肛門形成を施行する。本術式は直腸の最低限の剥離と括約筋の最小限の切開で、直腸を括約筋の中心で下ろしてくることが可能であり、有用と考えられた。

3-1　鎖肛術後、卵管留水腫により膣脱、直腸脱を来たした 1 例

新潟大学　大学院　小児外科[1]、新潟大学　医学部　産科婦人科学教室[2]

大山　俊之[1)]、窪田　正幸[1)]、小林　隆[1)]、荒井　勇樹[1)]、横田　直樹[1)]、斎藤　浩一[1)]、小林　暁子[2)]

【はじめに】鎖肛術後約 50 年を経過し、膣・直腸脱を来たした症例を経験したので報告する。【症例】51 歳女性。幼少期に鎖肛根治術を施行され（病型不明）、直腸脱に対し Thiersch 法を受けていた。今回、膣後壁脱、直腸脱のため近院外科を受診し、既往より当科および婦人科紹介となった。膣後壁に腫瘤性病変を触知し、当初は直腸瘤が疑われたが、画像精査にて子宮左側から膣背側に及ぶ液体貯留を認め、嚢胞の一部は U 字型に変形して直腸から肛門近傍に延長していた。この嚢胞性病変が膣・直腸脱の原因と考えられ、婦人科にて経膣エコーガイド下に穿刺され、黄色漿液性内容液 85ml が吸引され、膣脱は軽減した。嚢胞内に卵管采と考えられる臓器を認めたため、卵管留水腫と考えられている。直腸脱は日常生活に支障ない程度で手術希望はなく、現在、経過観察となっている。【まとめ】女性の鎖肛術後の長期予後として、まれな、卵管留水腫による膣脱、直腸脱を経験した。

3-2　鎖肛術後の高度便秘症を呈した2例

近畿大学　医学部　外科学教室　小児外科部門
八木　誠、澤井　利夫、吉田　英樹

鎖肛術後の便秘症は排便機能異常の一つとしてよく見られるものであるが、青年期に外科的手術により高度の便秘が改善した2例を報告する。【症例1】15歳女性。直腸膣前庭瘻でPSARP施行。2歳ころより便秘がみられたが、保存的に加療。途中近医にて加療されていたが、13歳で高度の便秘として当科紹介となった。造影では直腸からS状結腸まで著明に拡大。保存的に改善みられないため、人工肛門造設。直腸粘膜生検ではAch-E染色陽性線維の増生あり、H病と診断し、手術を行った。【症例2】18歳男児。直腸尿道瘻でPSARP施行。術後早期から高度の便秘あり、造影では著明な腸管拡張あり。早期より外科治療の必要性を話してきたが、了承を得られず。大学入学を機に人工肛門造設。直腸粘膜生検ではAch-E染色陽性線維の増生なく、分節腸管拡張症として手術した。2例とも術後の排便機能は著明な改善をみている。よりこのような症例に対しては早期の診断・治療が必要である。

3-3　S状結腸切除が著効した低位鎖肛術後高度便秘症の1例

筑波大学　医学医療系　小児外科
小野　健太郎、増本　幸二、産本　洋平、坂元　直哉、高安　肇、新開　統子、瓜田泰久、五藤　周、川上　肇、石川　未来、佐々木　理人、青山　統寛、藤井　俊輔

【症例】5歳男児．在胎41週，出生体重2,990g．出生時肛門を認めず，肛門皮膚瘻の診断で日齢1に会陰式肛門形成術を施行した。その際、深部での尿道と瘻孔の剥離が困難で，肛門を前方気味に形成する結果となった．術後より便秘が遷延し，3歳時にASARPを施行し外括約筋の中心に肛門を形成した．しかし再手術後も浣腸による1回/3日程度の排便であり，注腸造影ではS状結腸過長と同部の高度拡張を呈していた．なお、Hirschsprung病は否定されていた．S状結腸過長症による便秘が原因と判断し，5歳時に開腹S状結腸切除術を施行した．臍部切開で開腹し，S状結腸拡張部30cmを切除し端々吻合した．術後経過は順調で現在外来経過観察中であるが，排便は2回／日と良好で，自排便も得られている．
【考察】直腸肛門奇形の術後では病型が低位であっても頑固な排便障害へと進展する症例もあるため，追加手術も視野にいれた綿密な経過観察が不可欠である．

3-4　腹腔鏡下中間位鎖肛術後の尿道後部憩室に対して経尿道的レーザー焼灼を行なった2例

名古屋大学大学院医学系研究科　小児外科学[1]、名古屋大学大学院医学系研究科　泌尿器科学[2]

城田　千代栄[1)]、内田　広夫[1)]、檜　顕成[1)]、田井中　貴久[1)]、住田　亙[1)]、横田一樹[1)]、大島　一夫[1)]、白月　遼[1)]、千馬耕亮[1)]、田中　裕次郎[1)]、石田　昇平[2)]

鎖肛根治術後の直腸尿道瘻遺残による尿道後部憩室は、時に増大し尿閉を引き起こし、悪性腫瘍の発生の可能性もあるため切除の対象となるが、癒着や尿道狭窄、括約筋の損傷などの可能性があり簡単な手術ではない。低侵襲な治療として経尿道的ホリミウム・ヤグ（Ho:YAG）レーザー焼灼を 2 例に試みたので報告する。Ho:YAG レーザーは吸収深度は 0.4mm 以下と浅く、組織透過性が低く、水に吸収されるため安全性に優れている。　症例はともに rectobulbar fistula の男児で、症例 1 は生後 2 ヶ月で腹腔鏡下根治術を行った。術後 1 年の尿道造影で憩室が認められ、5 回の経尿道的レーザー焼灼により憩室は完全に閉鎖した。症例 2 は生後 9 ヶ月で腹腔鏡下根治術を行った。術後 3 ヶ月の尿道造影で憩室が認められ、現在までに計 4 回の経尿道的レーザー焼灼を行いほぼ閉鎖している。２例とも焼灼による合併症は認められなかった。レーザー焼灼は 1 ヶ月毎に行う方が効果的であると思われた。

3-5　当院における中間位鎖肛・再手術症例の検討

東海大学　医学部　外科学系　小児外科学

清水　隆弘、森　昌玄、鄭　英里、平川均、上野　滋

【はじめに】当院では中間位鎖肛に対して仙骨会陰式肛門形成術（Stephens）を第一選択にしている．再手術になった 4 症例について文献的考察を加えて報告する．症例 1:Recto-bulbar fistula, Stephens 術後の男性．21 歳時に直腸粘膜脱のため再初診．粘膜縫縮術を 2 回施行後も症状改善なく，MRI で直腸が括約筋群の前方を通過していることを指摘され，Limited PSARP を施行された．症例 2:Anal agenesis, Stephens 術後の男児．術後 3 か月目に肛門閉鎖をきたし，再吻合術を施行された．症例 3:Recto-bulbar fistula, 前方会陰式術後の男児．術後 3 か月目に肛門周囲膿瘍，吻合部狭窄を合併，排便コントロール困難のため術後 5 か月目に後壁縦切開横縫合による吻合部拡張術を施行された．症例 4:Recto-bulbar fistula, Stephens 術後の男児．直腸後壁の穿孔を合併し同部位に瘢痕形成．排便コントロール困難のため術後 1 年 8 か月目に後壁縦切開横縫合による吻合部拡張術を施行された．

4-1　肛門挙筋群レベルまで直腸縫合固定を行った直腸脱の１例

順天堂大学医学部附属順天堂医院　小児外科

山田　舜介、宮野　剛、越智　崇徳、石井　惇也、岡和田　学、古賀　寛之、山高　篤行

症例は既往歴のない 16 歳男児。当院受診時、排便の度に直腸脱を認め、脱出腸管は怒責時 20cm まで達した。下部消化管造影検査では、直腸が肛門縁近傍から翻転していることを確認。便性管理による保存的治療を 6 ヶ月間行うも改善なく、手術適応と判断した。腹腔鏡下に腹腔内を観察すると、小骨盤腔内は深く、直腸の固定は不良であった。直腸の全周性剥離を腹膜翻転部を越えて行い、直腸の翻転が肛門縁近傍から起こっているため、特に直腸後壁は肛門挙筋群レベルまで剥離した。また若年者の初回手術であることを考慮してメッシュは使用せず、直腸後壁と肛門挙筋群から前仙尾靭帯へ 3 針、仙骨前筋膜から仙骨岬角へ計 4 針、3-0 Prolene にて縫合固定した。術後 2 週間、整腸剤/緩下剤/浣腸にて便性を管理し、6 ヶ月が経過した現在、経過良好で再発は認めていない。

4-2　治療に難渋している脳性麻痺・発達障害を合併した総排泄腔遺残症の１例

弘前大学　医学部　小児外科学講座

平林　健、小林　完、木村　俊郎、袴田　健一

症例は、重度発達障害・多発奇形・脳性麻痺を合併した 7 歳の総排泄腔遺残症の女児。胎児期より、double bubble sign・下腹部腫瘤（総排泄腔遺残疑い）を指摘されていた。在胎 32 週 5 日、胎児機能不全のため　緊急帝王切開にて出生。出生時体重 1240g。Apgar1/4 で、人工呼吸管理を行った上、出生当日　S 状結腸人工肛門造設・膀胱瘻造設術を施行。精査の結果、重複子宮・重複膣を合併した総排泄腔遺残症と診断された。経過中に十二指腸膜様狭窄根治術・ラッド手術・噴門形成術・気管切開術などを施行された。生後 1 歳 9 か月時に腹仙骨会陰式肛門形成術を、11 か月時に人工肛門閉鎖術を施行。現在、ほぼ寝たきり状態で重症心身障害児（者）病棟に入院中であるが、粘膜脱ならびに肛門周囲のびらんの治療に難渋している。本例のごとく発達障害・脳性麻痺を合併した症例に対する　今後の膣形成も含めた治療方針に関して　ご意見を伺いたく、本例を提示いたします。

4-3　尿性・胎便性腹水による胎便性腹膜炎を認めた総排泄腔遺残の１例

三重大学　消化管・小児外科 [1]、三重県立総合医療センター　外科 [2]

長野　由佳 [1)]、井上　幹大 [1)]、松下　航平 [1)]、小池　勇樹 [1)]、大竹　耕平 [2)]、内田　恵一 [1)]、楠　正人 [1)]

患児は胎児期の超音波検査で多量の腹水と腸管拡張を認め，両側水腎水尿管，双頸双角子宮，水膣症を伴っていたため，総排泄腔遺残により尿や胎便が腹腔内へ逆流している可能性が示唆された。肺の成熟を優先し，満期での計画分娩の方針としたが，胎児水腫の増悪と心音低下を認め，在胎 34 週 5 日に緊急帝王切開で出生した。総排泄腔遺残と診断確定後，生後 3 日目に開腹ドレナージ，横行結腸人工肛門造設術を施行した。術中所見で胎便成分を混じた尿性腹水を認め、小腸全体に高度の癒着を認めたが、消化管の穿孔や閉鎖は認めなかった。その後の精査で、膣内に中隔を認め、直腸は膣中隔下端に開口していたため、排尿障害と相俟って胎便が腹腔内へ逆流したと考えられた。生後３ヶ月までは尿路感染を繰り返したため、膀胱内のカテーテル留置を要したが、その後は抗菌薬予防内服により感染を起こすことなく生後４ヶ月で退院となった。

4-4　学童期に肛門形成術を行ったCurrarino症候群の１例

飯塚病院　小児外科

河野　淳、中村　晶俊

症例は 9 歳男児。出生時、肛門窩には明らかな瘻孔は無く、中間位鎖肛の診断で日齢 1 に人工肛門造設を施行。日齢 3 に肛門窩にピンホールの排便を認め、胎便が排泄。瘻孔造影で直腸皮膚瘻と診断。瘻孔拡張で排便経路を確保して人工肛門閉鎖し退院。その後、徐々に排便障害が進行した。精査にて仙骨前腫瘤を認め、仙骨奇形を伴わない Currarino 症候群と診断。直腸肛門奇形は、肛門内圧は正常、瘻孔は外肛門括約筋の中心を通過、より直腸肛門狭窄と診断。腫瘤摘出術が施行されたが、術後も浣腸や緩下剤内服を行なっても、頻回の摘便が必要になるほど排便障害は続いていた。排便機能改善のため、9 歳時に後方矢状切開アプローチによる肛門形成術を施行した。術後、排便状態は改善した。直腸肛門狭窄の拡張で経過観察される Currarino 症候群で排便コントロールが不良の症例では、早期に肛門形成を行なうことが望ましいと考えられる。

5-1　羊水過小による肺低形成を伴った Type2 congenital pouch colon の１例

慶應義塾大学　小児外科

森　禎三郎、山田　洋平、阿部　陽友、高橋　信博、藤村　匠、星野　健、黒田　達夫

Congenital pouch colon は直腸肛門奇形の特殊な一型であり拡張結腸の機能不全より、排便機能獲得に難渋する。症例は 1 歳 4 か月の男児。在胎 20 週に羊水過小と拡張腸管を指摘された。羊水過小増悪のため在胎 34 週で帝王切開にて出生、生後に鎖肛を認め、胎便の混在した尿の排泄から消化管との交通が確認された。腸管拡張は尿の充満と推測され、羊水過小の一因と考えられた。出生後肺低形成による呼吸状態不良のため、経尿道的腸管減圧を行った後の日齢８に回腸人工肛門造設術を施行した。膀胱に繋がる pouch 状の結腸を認め congenital pouch colon Type ２と診断した。１歳０か月時に瘻孔離断術を施行、pouch colon が将来的に使用可能かを判定する目的にパウチ遠位側に結腸瘻造設を追加したが、結腸瘻からの排出なく瘻孔は自然閉鎖した。文献的にパウチの pull through 後の排便機能は不良であり、非拡張部腸管の pull thorough による肛門形成術を行う方針としている。

5-2　直腸肛門奇形における S 状結腸離断型人工肛門の意義

国立病院機構岡山医療センター[1]、NPO 法人中国四国小児外科医療支援機構[2]

中原　康雄[1)]、後藤　隆文[1,2)]、仲田　惣一[1,2)]、花木　祥次朗[1,2)]、浮田　明見[1,2)]、青山　興司[1,2)]

【目的】直腸肛門奇形における、S 状結腸離断型人工肛門の成績について検討。【方法】2009-2016 年の直腸肛門奇形のうち、S 状結腸離断型人工肛門を造設した症例を対象とした。術式は Pena らの報告に準じた。後方視的に診療録より情報を抽出。直腸の太さの目安として画像から直腸前後径/S2 椎体前後径（R/S）を測定。【結果】男児 10 例、女児総排泄腔遺残症 3 例。全例で検討：創部感染 0%、prolapse0%、パウチが貼りにくい（低い人工肛門等）30.8%、根治術時（4 例腹腔鏡）に腸管がとどかない 0%。男児のみで検討：根治術前尿路感染 10%。術前の R/S は 2.5 未満 60%、2.5 以上 4.0 未満 30%、4.0 以上 10%。【考察】離断型人工肛門は手術が煩雑であること、創が大きいことなどデメリットはあるが、術後の合併症、根治術前の尿路感染は少なかった。直腸の拡張の程度も根治術時に問題となるような症例はなく良い術式であるが、今後ループ型との比較が必要である。

5-3　根治術前に人工肛門造設をおこなった 10 歳以上の Hirschsprung 病 3 例の検討

順天堂大学医学部附属順天堂医院

矢崎　悠太、古賀　寛之、岡和田　学、宮野　剛、山高　篤行

Hirschsprung 病（以下、H 病）の多くは新生児期または乳幼児期に診断がなされ根治手術が施行されるが、無神経節域が短い場合には慢性便秘として内服や浣腸などで外来管理され、診断が遅れることがある。10 歳以降に診断がなされ、根治術前に人工肛門造設を行なった短域無神経節型 H 病の 3 例を経験し後方視的検討を行った。

症例は 22 歳、14 歳、10 歳、いずれも女性であり、排便コントロールの悪化に伴い当科へ紹介受診された。注腸造影及び直腸粘膜生検によって H 病の診断がなされた。いずれの症例においても初診時の腹部 X 線検査にて直腸から S 状結腸にかけて著明な拡張が見られていたため、腸管安静を目的として根治術前 91、35、44 日に回腸瘻を造設した。腹腔鏡補助下に結腸プルスルー術を施行したが腸管の拡張は改善していた。術後重大な合併症は生じなかった。根治術後 181、33、96 日で回腸瘻を閉鎖したが、以降も良好な排便コントロールが得られている。

5-4　ヒルシュスプルング病マウスモデルにおける肛門管の感覚神経と Anorectal line

順天堂大学　医学部　小児外科・小児泌尿生殖器外科[1]、東京医科歯科大学大学院保健衛生学研究科分子生命情報解析学分野[2]

武田　昌寛[1)]、宮原　克[1)]、赤澤　智宏[2)]、山高　篤行[1)]

目的ヒルシュスプルング病(HD)における経肛門的アプローチに関して、解剖学に基づいた明確な粘膜剥離の開始位置は定められていない。我々は HD マウスを使用し、経肛門的アプローチのための肛門管の解剖を検証した。方法 Sox10-venus マウスにおける肛門管の Anorectal line(ARL)と腸管上皮、腸管神経の位置関係を検証した。またコントロールマウスと HD マウスの肛門管を感覚神経マーカーである substance P と CGRP で染色し、感覚神経の評価を行った。結果 ARL は肛門管における重層扁平上皮と円柱上皮の境界であった。肛門管の感覚神経系に関して、ARL より肛門側が口側より明らかに感覚神経が有意であった。またコントロールマウスと HD マウスにおいて感覚神経の発現に差を認めなかった。結語 HD でも肛門の感覚神経は正常であり、経肛門的アプローチの剥離開始位置は ARL が推奨される。