

症例報告

胃穿孔による汎発性胸・腹膜炎を伴った成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1救命例

横浜市立みなと赤十字病院外科, 横浜市立大学大学院医学研究科消化器病態外科学*

諏訪 宏和 長堀 優 高橋 徹也 山本 晴美
長田 俊一 窪田 徹 小尾 芳郎 阿部 哲夫
遠藤 格* 嶋田 紘*

症例は65歳の男性で、精神疾患にて他院に入院中であったが、腹部激痛、ショック状態のため当院に搬送された。胸部単純X線検査、胸腹部CTにて横隔膜ヘルニアに伴う消化管穿孔、汎発性胸・腹膜炎の診断で緊急手術を施行した。左横隔膜後縁に約5cmのヘルニア門を認め、胃体上部大彎に約2cmの穿孔を認めた。胃部分切除、ヘルニア門の直接縫合閉鎖・ドレナージ術を行った。術後も敗血症性ショックの状態が持続したが徐々に回復し、術後第104病日に前医に転院となった。Bochdalek 孔ヘルニアの成人例は比較的まれとされている。予後は一般に良好とされているが、脱出臓器の嵌頓・穿孔例では重篤化することがあるため、症状の有無にかかわらず早期に手術を行う必要があると考えられた。

はじめに

Bochdalek 孔ヘルニアは新生児期に循環・呼吸不全を来し、緊急手術の適応となる疾患である¹⁾。一方で、約10%の症例では、成人まで無症状で経過し腹痛や嘔吐といった消化器症状で発症する²⁾。今回、我々は胃穿孔を伴い重篤化した成人Bochdalek 孔ヘルニアを経験したため報告する。

症 例

患者：65歳、男性

主訴：腹痛・チアノーゼ

既往歴：アルコール性精神障害で他院入院中。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成17年6月上旬より腹痛が出現した。翌日、腹部症状が増悪し、前医での腹部単純X線検査により腸閉塞が確認された。その後、血圧低下、チアノーゼが出現し、ショック状態となったため当院に救急搬送された。

入院時現症：当院到着時、意識は混濁、収縮期血圧が50~60mmHgであり、四肢末梢にチア

ノーゼを認めた。上腹部を中心に圧痛・筋性防御を認めた。

血液検査所見：白血球数 $2,100/\text{mm}^3$ 、CRP 2.1 mg/dlと白血球数の減少を認めた。血液ガス分析では、pH 7.297、BE -11.2mM/lと著明なアシドーシスを呈していた (Table 1)。

胸部単純X線検査所見：左肺野全体に透過性の低下、左横隔膜陰影の消失を認めた (Fig. 1)。

胸腹部単純CT所見：左胸腔内に嵌入した胃、小腸、S状結腸と胸水の貯留を認めた。小腸壁は肥厚しており、絞扼が疑われた (Fig. 2a, b)。腹部では、腹水の貯留、および free air を認めた (Fig. 2c)。

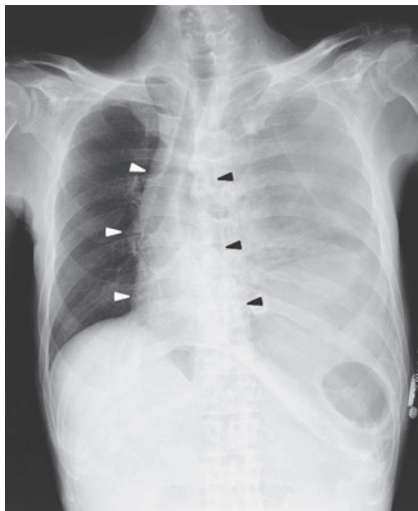
以上から、横隔膜ヘルニアへの消化管の嵌頓とそれに伴う穿孔性汎発性胸・腹膜炎と診断し、緊急手術を行った。

手術所見：左上腹部斜切開で開腹し腹腔内を検索すると、多量 of 食物残渣を混じた腹水を腹腔内全体に認めた。左横隔膜後縁の腰肋三角部に約5cmのヘルニア門を認めた。ヘルニア嚢は認めず、胸腔内は多量 of 食物残渣で汚染されていたが、臓器の嵌頓はなかった (Fig. 3a)。陽圧換気により自

<2010年6月16日受理>別刷請求先：諏訪 宏和
〒236-0004 横浜市金沢区福浦3-9 横浜市立大学
大学院医学研究科消化器病態外科学

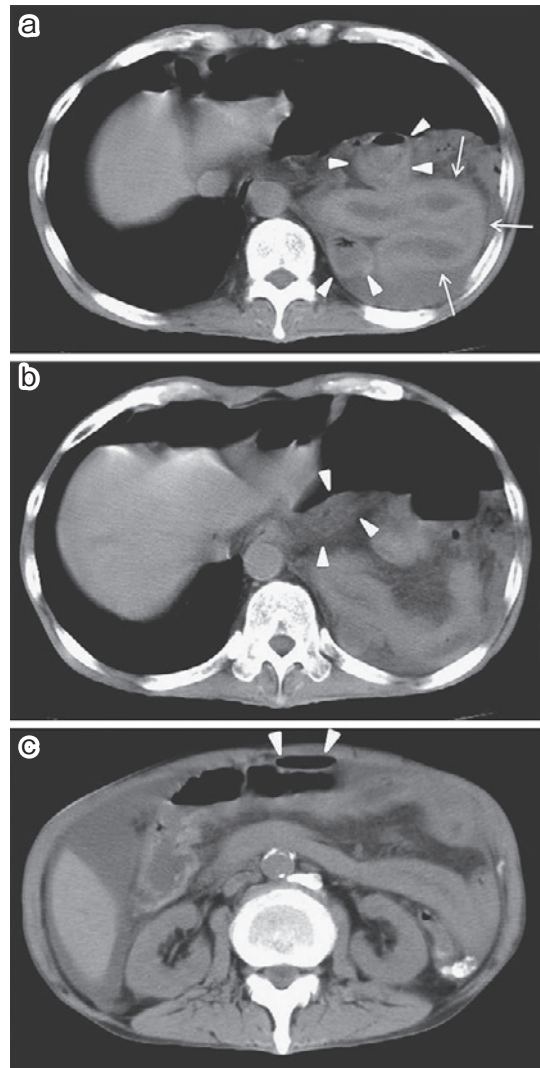
Table 1 Laboratory data on admission

CBC		Blood Biochemistry	
WBC	2,100 /mm ³	TP	5.8 g/dl
RBC	432 /mm ³	Alb	3.4 g/dl
Hb	12.3 g/dl	BUN	17.3 mg/dl
Ht	37.1 %	Cr	1.46 mg/dl
Plt	13.3 /mm ³	AST	30 IU/l
		ALT	26 IU/l
Blood Gas Analysis		Na	124 mEq/l
pH	7.297	K	4.3 mEq/l
BE	- 11.2 mM/l	Cl	97 mEq/l
		T-Bil	0.7 mg/dl
		CRP	2.1 mg/dl

Fig. 1 Chest radiography showed hypolucency of whole left lung field, and displacement of the mediastinum (arrow-head).

然に還納されたものと考えられた。胃体上部大彎側に約2cmの穿孔を認め、その周囲も約5cmにわたって発赤、壁の菲薄化がみられた(**Fig. 3b**)。菲薄部を含めた胃体上部の部分切除を行った。また、小腸やS状結腸の漿膜・腸間膜に鬱血・点状出血を認めたが、壊死はなく切除はしなかった。大量の生理食塩水で胸腔内・腹腔内を洗浄したうえで、胸部・腹部にドレナージチューブを挿入した。ヘルニア門は直接縫合、閉鎖した。

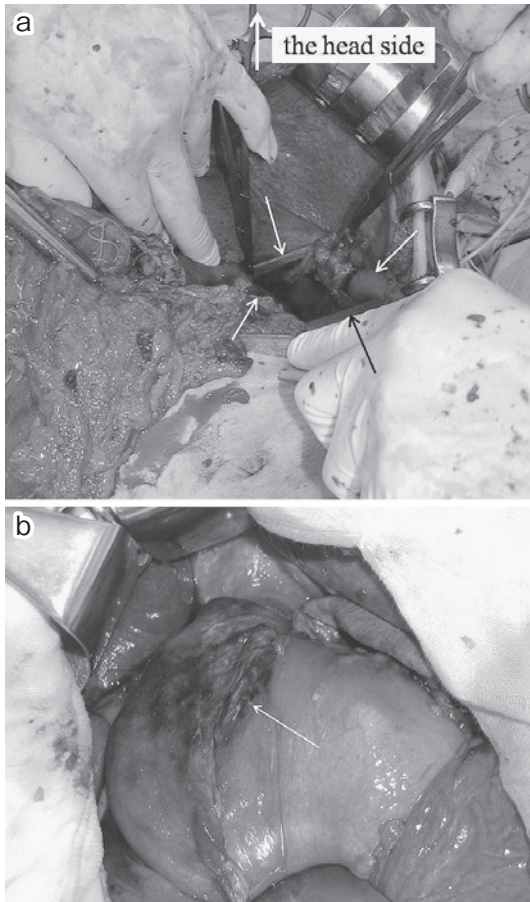
病理組織学的検査所見：切除検体は7×6cmで、中央部に2cmの穿孔を認めた。組織学的には、

Fig. 2 a : Chest CT scan showed herniated small intestine (arrow) and sigmoid colon (arrow-head) to left thoracic cavity and pleural effusion. b : Chest CT scan showed herniated stomach (arrow-head). c : Abdominal CT scan showed ascitis and free air (arrow-head) of upper abdominal cavity.

粘膜上皮の脱落と粘膜下層のフィブリン浸出、血管の拡張、および細菌塊を認めたが、穿孔部周囲に線維化はなく、良性潰瘍の穿孔よりも、嵌頓・絞扼による穿孔が疑われた。

術後経過：術後も敗血症性ショックの状態が持続し、呼吸・循環動態が不安定であったため、人

Fig. 3 a : Hernial orifice was seen in left vertebrocostal trigone (arrow). b : Gastric perforation (arrow) about 2cm was seen in the greater curvature of the upper third of stomach.



工呼吸器管理を行った。また、術当日、第1病日にエンドトキシン吸着療法を施行したところ循環動態が改善し、第4病日に抜管した。第7病日に胸腔・腹腔の全ドレーンを抜去した。第18病日に経口摂取を開始したが摂取量が増えず、栄養状態の改善、創感染の管理に難渋した。第104病日に精神疾患治療のため前医に転院となった。

考 察

Bochdalek 孔ヘルニアは、胎生期の胸腹膜孔の閉鎖不全によって生じた欠損孔を通じて、腹腔内臓器が胸腔内に脱出した状態で、先天性の横隔膜ヘルニアの約70%を占める¹⁾²⁾。ほとんどが新生児

期に重篤な呼吸・循環障害を呈し緊急手術となることが多い疾患であるが、まれに成人期まで無症状で経過する症例があり、成人 Bochdalek 孔ヘルニアと呼ばれている³⁾。成人期に発症する病因として、横隔膜に欠損を認めながらも新生児期には無症状で経過し成人になって初めて発症した先天性の要素の強いものと、先天性の横隔膜脆弱部に何らかの誘因が作用してヘルニアが生じた後天性の要素の強いものがあるとされる。医学中央雑誌の1983年～2006年の期間で「成人 Bochdalek 孔ヘルニア」で検索したところ1983年に三好らが58例の本邦報告例を集計しており、以後58例の報告を認めた⁴⁾。自験例を加えた117例を集計した。年齢は、男性54例、女性66例と女性に多く、発症年齢は平均46歳(18～81歳)であった。脱出臓器は大腸88例、胃55例、脾臓53例、小腸52例、大網39例、膀胱7例、腎臓6例であった。初発症状は、腹部症状として腹痛60例、嘔気・嘔吐21例であった。胸部症状としては、呼吸困難28例、胸背部痛28例であった。新生児症例が重篤な呼吸障害を来すのに対し、肺の十分発達した成人例では腹部症状が初発となることが多かった⁵⁾⁶⁾。また、症状はなく、健診の胸部X線検査で異常を指摘された症例が16例あった。脱出臓器の穿孔を伴う症例は8例と非常にまれであった。穿孔臓器としては、横行結腸が4例と最も多く、次いで胃が3例、腹部食道1例の順であった。胃穿孔の部位は、本例では胃体上部大彎であったが、過去の報告では胃体上部前壁が1例、穿孔部位の記載がないものが1例であった (Table 2)^{1)7)～12)}。

診断は患側の呼吸音減弱、胸壁からの腸雑音聴取などの理学的所見、および胸部単純X線検査にて胸腔内の消化管ガス像を認めることが重要である¹³⁾¹⁴⁾。脱出臓器の確認や、脱出部位の同定にはCTやMRIが有用とされている。また、消化管造影検査も脱出臓器の同定に有用である。

安藤ら⁵⁾は本症はヘルニア囊のない仮性ヘルニアであることが多いと報告している。今回の117例の集計でも、ヘルニア囊が存在しなかったものは76例(65%)、あったものは7例(6%)、不明34例(29%)と仮性ヘルニアが多かった。本症例

Table 2 Reported cases of a Bochdalek's hernia with gastrointestinal perforation

Author	Year	Age	Sex	Chief complaint	Herniated organ	Perforated organ	Hernial sac	Approach	Procedure	Prognosis
1 Matsui ⁷⁾	1974	22	female	abdominal pain	stomach, small bowel, transverse colon	stomach	none	laparotomy	simple closure	Dead
2 Takeshita ⁸⁾	1977	26	male	unknown	stomach, small bowel, spleen, pancreas	esophagus	none	laparotomy	simple closure	Alive
3 Kashima ⁹⁾	1993	70	male	abdominal pain	transverse colon	transverse colon	none	thoracotomy, laparotomy	simple closure	Dead
4 Hirano ¹⁰⁾	1995	74	female	abdominal pain	transverse colon	transverse colon	none	thoracotomy, laparotomy	simple closure	Alive
5 Yoshida ¹⁾	2001	61	female	epigastralgia	stomach, transverse colon	transverse colon	none	thoracotomy, laparotomy	simple closure	Dead
6 Hattori ¹¹⁾	2006	22	female	epigastralgia	stomach, spleen	stomach	unknown	laparotomy	simple closure	Alive
7 Matsutani ¹²⁾	2008	50	male	chest pain	transverse colon	transverse colon	none	thoracotomy, laparotomy	simple closure	Alive
8 Our case		65	male	abdominal pain, cyanosis	stomach, small bowel, sigmoid colon	stomach	none	laparotomy	simple closure	Alive

でも、開腹時にヘルニア嚢は認めず、そのため胸腔内に胃穿孔部から排出された食物残渣が認められた。

予後は、新生児例では死亡率が50%と不良であるが、成人例では良好であるとされる¹³⁾。しかし、脱出臓器の絞扼や穿孔などを合併すると、本症例のように重篤化することから、症状の重症度にかかわらず、早期の閉鎖術が推奨されている⁶⁾¹⁵⁾。実際、今回集計した脱出臓器穿孔例は、8例中3例が死亡していた(Table 2)。手術術式は、還納の容易さや還納後の位置確認ができること、開胸に比べ手術侵襲が小さいことから開腹アプローチが選択されることが多い。しかし、胸腔内の癒着や汚染がある場合には開胸アプローチを追加するなど、個々の症例にあった術式を選択すべきである²⁾¹⁶⁾。ほとんどの症例では、ヘルニア孔は結節縫合やマットレス縫合で閉鎖することが可能であり再発例の報告は1例のみであるが、欠損孔が大きく直接閉鎖が困難な場合には人工メッシュを用いた閉鎖術が有用である³⁾⁴⁾¹⁷⁾。自験例では、胃穿孔を伴っており、胸腔内・腹腔内ともに高度の汚染を認めたが、敗血症性ショックの状態であり、侵襲の大きな開胸は行わず、ヘルニア門からカテーテルを挿入し胸腔内を大量の生理食塩水で洗浄する方法を選択した。

本症例では、受診時の腹部CTでは胃、小腸、S状結腸の胸腔内への脱出を認めたものの、穿孔を起こした臓器は胃のみであった。小腸、S状結腸は比較的広範囲にわたり鬱血や点状出血を認めたが、胃壁の変化は穿孔部周辺に限局していた。これは、小腸に比べ胃の可動性が低く、そのため比較的小範囲の胃壁の虚血が長時間持続したためと推察された。

エンドトキシン吸着療法(polymyxin-B immobilized column direct hemoperfusion; 以下、PMX-DHPと略記)はエンドトキシンによる敗血症性ショックに対し、循環動態、予後を改善させる有効な治療法と考えられており、本症例においても術直後にPMX-DHPを施行したことにより循環動態の改善を得た。本症例では種々の細菌培養でもグラム陰性桿菌を証明することができなかった

が、敗血症性ショックにかかわるエンドトキシン以外のメディエーターである anandamide や 2-arachidonyl glycerol という内因性大麻 (cannabinoids) が PMX-DHP により吸着され、開始早期より昇圧効果が得られたと考えられた¹⁸⁾¹⁹⁾。

文 献

- 1) 吉田秀明, 枝澤 寛, 野納邦昭ほか: 結腸の完全断裂をきたした成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 日臨外会誌 **62**: 929—933, 2001
- 2) 須浪 毅, 金村洙行, 山田 忍ほか: 胃軸捻転症を伴った成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 日臨外会誌 **64**: 65—69, 2003
- 3) 星野和義, 谷口哲也, 久光和則: メッシュプラグを用いた手術により治癒しえた成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 手術 **58**: 2185—2188, 2004
- 4) 三好新一郎, 門田康正, 中原数也ほか: 成人 Bochdalek 孔ヘルニア—3 自験例と本邦報告 58 例の検討—, 日胸外会誌 **31**: 1587—1593, 1983
- 5) 安藤修久, 藤竹信一, 間瀬隆弘ほか: 成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 日臨外医会誌 **55**: 2291—2294, 1994
- 6) 松田明久, 田尻 孝, 宮下正夫ほか: 重症な呼吸, 循環不全を呈した成人 Bochdalek 孔ヘルニア嵌頓の1例. 日臨外会誌 **64**: 70—73, 2003
- 7) 松井幸雄, 秋山善之丞, 本橋博文ほか: 妊娠9ヵ月横隔膜ヘルニアによる死亡の1例. 日産婦東京会報 **23**: 65, 1974
- 8) 竹下俊文, 飯塚邦雄, 黒田義則ほか: 食道穿孔を伴った Bockdalek 孔ヘルニアの1例. 日外会誌 **78**: 1117, 1977
- 9) 賀嶋俊隆, 井上恒一, 久米誠人ほか: 成人 Bochdalek 孔ヘルニアによる胸腔内結腸穿孔の1症例. 胸部外科 **46**: 819—822, 1993
- 10) 平野 聡, 前田喜晴, 斉藤 護ほか: 成人 Bockdalek 孔ヘルニアの1例. 日臨外医会誌 **56**: 1156—1160, 1995
- 11) 服部正興, 玉内登志雄, 久世真悟ほか: 胸腔内で胃穿孔をおこした成人 Bockdalek 孔ヘルニアの1例. 日臨外医会誌 **67**: 1537—1540, 2006
- 12) 松谷泰男, 間中 大, 平田義弘ほか: 胸腔内結腸穿孔をきたした成人 Bockdalek 孔ヘルニアの1例. 臨外 **63**: 1009—1013, 2008
- 13) 禰屋和雄, 小山 勇, 山崎達雄ほか: 成人 Bochdalek 孔ヘルニアによる胃軸捻転症の1症例. 腹部救急診療の進歩 **7**: 901—905, 1987
- 14) 小林成行, 池田昭彦, 清水信義: 胃軸捻転症を伴った成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 日臨外会誌 **64**: 2893—2896, 2003
- 15) 野村裕紀, 水島康博, 唐沢学洋ほか: 成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 臨と研 **79**: 1004—1006, 2002
- 16) 近藤慎浩, 境 雄大, 大徳和之ほか: 明らかな誘因なく発症した成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 胸部外科 **55**: 601—604, 2002
- 17) 片桐義文, 鬼束惇義, 加藤喜彦ほか: 腹腔鏡下整復術を施行した再発成人 Bochdalek 孔ヘルニアの1例. 手術 **57**: 1705—1708, 2003
- 18) 藤田尚宏, 毛利貴子, 山下友子ほか: エンドトキシン吸着の効果発現機構. ICU と CCU **24**: 881—889, 2000
- 19) 永井義夫, 福家智也, 本田 亘ほか: MRSA による敗血症性ショックに対し, エンドトキシン吸着療法が著効した1例. 京都医会誌 **52**: 167—170, 2005

A Case Report of a Bochdalek's Hernia in an Adult with Gastric Perforation

Hirokazu Suwa, Yutaka Nagahori, Tetsuya Takahashi, Harumi Yamamoto,
Shunichi Osada, Toru Kubota, Yoshirou Obi, Tetsuo Abe,
Itaru Endo* and Hiroshi Shimada*

Department of Surgery, Yokohama Minato Red Cross Hospital
Department of Gastroenterological Surgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine*

We report an adult case of a Bochdalek's hernia with gastric perforation. A 65-year-old man admitted for abdominal pain and septic shock was found in chest radiography and abdominal computed tomography to have a diaphragmatic hernia with gastrointestinal perforation. We conducted partial gastrectomy, hernial orifice closure, and abdominal drainage. Bochdalek's hernia accounts for 70% of congenital diaphragmatic hernia, although occurrence in an adult is rare. Since impacting or perforation of the herniated organ may rapidly worsen, we recommend early surgery regardless of whether the patient is a symptomatic.

Key words : diaphragmatic hernia, Bochdalek's hernia, gastric perforation

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 43 : 1212—1217, 2010]

Reprint requests : Hirokazu Suwa Department of Gastroenterological Surgery, Yokohama City University
Graduate School of Medicine
3-9 Fukuura, Kanazawa-ku, Yokohama, 236-0004 JAPAN

Accepted : June 16, 2010