



HOKKAIDO UNIVERSITY

Title	呼吸困難で発症した遅発性ボクダレックヘルニア
Author(s)	早川, 峰司; Hayakawa, Mineji; 丸藤, 哲他
Citation	日本救急医学会雑誌, 12(2), 63-66
Issue Date	2001-02
Doc URL	https://hdl.handle.net/2115/45413
Type	journal article
File Information	Hayakawa12-2_63-66.pdf



呼吸困難で発症した遅発性ボクダレックヘルニア

A case of late-onset Bochdalek's hernia associated with severe dyspnea

遅発性ボクダレックヘルニア

早川 峰司、丸藤 哲*、森本裕二*、
武山 佳洋、中村 宏治、古根 高、松原 泉

Mineji Hayakawa, Satoshi Gando*, Yuji Morimoto*,
Yoshihiro Takeyama, Kouji Nakamura,
Takasi Furune, Izumi Matsubara

市立札幌病院 救命救急センター
*北海道大学 医学部 侵襲制御医学講座

Department of Emergency and Critical Care Medicine, Sapporo City General Hospital
*Department of Anesthesiology and Critical Care Medicine, Hokkaido University Graduate School of Medicine

〒060 - 8604
札幌市 中央区 北 11 条 西 13 丁目
市立札幌病院 救命救急センター
早川 峰司
Tel: 011 - 726 - 2211 Fax: 011 - 726 - 7912
e-mail: miniji@dream.com

1)	2)	3)
Diaphragmatic hernia	Infant	Dyspnea
横隔膜ヘルニア	乳児	呼吸困難

Bochdalek ヘルニアの多くは新生児期に激しい呼吸困難で発症する先天性疾患であるが¹⁾、まれに、乳児期以降の発症も報告されている²⁻⁹⁾。乳児期以降の発症では誤診率も高く^{3,5-9)}、乳児期の急性呼吸不全を呈する救急疾患の1つとして念頭に置くべき稀な疾患である。

我々は、全く無症状のまま1歳2ヶ月まで発育した女児が、感冒様の症状から急激に呼吸不全に陥り、X線写真などでBochdalekヘルニアと診断され、緊急手術にて救命しえた症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

患者：1歳2ヶ月の女児

主訴：呼吸困難

既往歴：40週、正常分娩。体重7.5kg、身長75cm。検診等で異常を指摘されたことはなく、

頻回に嘔吐したり、感冒に罹患するようなことも無かった。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：3日前より、鼻汁と咳嗽を認めていたが、 38°C 代の発熱を認めたため近医を受診した。肺炎の診断のもと2次救急病院に紹介受診となった。受診時、シーソー様の鼻翼呼吸とチアノーゼを認めていた。空気下の血液ガス分析にて、 $\text{pH } 7.402$ 、 $\text{p a C O}_2 \text{ } 27.9 \text{ mmHg}$ 、 $\text{p a O}_2 \text{ } 66.0 \text{ mmHg}$ と低酸素血症を認めた。胸部X線写真にて、左胸腔内に腸管像及びそれに伴う縦隔の右方偏移を認めた。(Fig.1)呼吸状態が徐々に悪化するため、当センター搬入となった。

治療経過：搬入時、シーソー様の鼻翼呼吸であったが、50%ベンチュリーマスクにて、経皮的動脈血酸素飽和度は100%を示していたが、啼泣するとチアノーゼは著明となった。呼吸音は左肺野で減弱していた。胸部computed tomography (CT) を施行したと

ころ、左胸腔ほぼ全体を腸管が占めており、肺は虚脱していた。同時に、それに伴う縦隔の右方偏移を認めた。(Fig.2) 前医の胸部 X線写真と合わせ、横隔膜ヘルニアと診断した。呼吸不全を呈しているため、緊急手術が施行された。

手術所見：全身麻酔下にて、左上腹部横切開で開腹した。横隔膜に直径約 4cm の Bochdalek 孔が開存し、小腸と結腸の約半分が脱出していた。脾臓の脱出はなかった。ヘルニア嚢は認めず裂孔より直接肺を認めたが、左肺の低形成が疑われた。腸回転異常など他の合併奇形は認めなかった。ヘルニア内容を還納し、胸腔内にドレーンを挿入した後にヘルニア孔を縫合閉鎖した。

術後経過：気管内挿管のまま集中治療室へ入室した。術後の胸部 X線写真では、左肺下葉に相当する部分には肺の構造を認めなかった。(Fig.3) 再拡張性肺水腫や肺炎の著明な増悪など認めず、術後第 4 病日に抜管した。胸部

X線写真では、左胸腔全体に肺紋理が認められ、横隔膜の挙上は認めなかった。呼吸状態が安定していることを確認した後、術後第5病日に一般病棟へ転棟となった。

考察

Bochdalekヘルニアは先天性横隔膜ヘルニアの中で最も頻度が高い^{1,2)}。主症状は高度の内臓脱出による肺、縦隔の圧排による呼吸循環器症状と嘔吐などの消化器症状である^{1,2)}。大部分は新生児期に発症し、出生直後より重篤な呼吸不全を呈することが多く、新生児期特有の疾患の1つとも考えられている^{1,2)}。

乳児期以降の発症例も散見される³⁻⁹⁾が、その中でも比較的多い成人症例では、肺は十分発達しており予備能力が大きいため重篤な呼吸器症状を示すことは少なく、脱出した腸管の閉塞症状が主である⁴⁾。しかし、本症例のような乳児期の発症では、肺の予備能力も

小さいため呼吸不全を呈しやすい^{3,5,7,8)}。本症例での主症状も呼吸困難であった。又、本症が乳児期以降に発症するためには何等かの臓器でヘルニア孔が被覆されていなければならない³⁾。本症例では Bochdalek 孔近傍と横行結腸に癒着があり、出生以降 Bochdalek 孔は横行結腸で被覆されていたと推測される。腸管が胸腔内に脱出した誘引としては、今回の感冒による咳嗽発作での腹腔内圧の一過性の上昇が考えられる。

診断では、呼吸困難、嘔吐等の臨床症状に加え、胸部 X 線写真が重要な位置を占める。しかし、Berman et al の報告⁸⁾によると、生後 8 週以降に発症した 26 例中 15 例が肺感染症や気胸などに誤診されており、他の多くの報告でもその診断は困難であるとされている^{3,5-9)}。その一因として、本症は新生児期特有の疾患と考えられており、乳幼児期の急性呼吸不全の原因としては非常にまれであることが挙げられる。また、脱出した腸管や胃が液体

等で満たされている場合は、異常陰影が腸管であると判断することは困難である³⁾。誤診により治療が遅れ病状が重篤化した報告や⁶⁾、気胸や膿胸と誤診し腸管が存在する胸腔内へドレーンを挿入した報告などがある⁶⁻⁹⁾。乳幼児期の呼吸不全の原因として本症の存在を念頭に置いた上での、救急診療の現場での適切な対応が必要である。本症例では、腹腔から胸腔へ連続する腸管内ガスを伴った腸管陰影が認められ、横隔膜ヘルニアの診断は比較的容易であった。また、Nasogastric tubeの挿入やチューブを使用したの消化管造影は他の心肺疾患との鑑別に有用でとの報告もある^{3,7-9)}。本症例のように胸部CTも有用である⁹⁾。

本症の新生児期発症例では救命率は60%と言われており、合併奇形の有無によってその予後は大きく左右される¹⁾。しかし、乳児期以降の発症例では、その救命率は比較的良好である^{3,4,6-9)}。本症例のような乳児期発症

例では呼吸不全が前面に出ることが多い^{3,5,7,8)}。そのような場合、Nasogastric tubeを挿入し内容物を吸引することにより、その臨床症状は緩和されることがある³⁾。また、陽圧換気を行うことにより、ヘルニア内容が自然に還納したとの報告もある⁵⁾。手術時期について言及した報告は少ないが、発症が急激な場合は、緊急手術も適応となる⁷⁾。本症例は急激な発症でもあり、肺虚脱の長期化や腸管虚血の危険性を避けるため緊急手術を施行した。長期の肺虚脱は再拡張性肺水腫の危険性を高める¹⁰⁾。また、脱出した腸管が絞扼し壊死を起こした症例も報告されている⁶⁾ため、可及的早期の手術が必要と考えられる。

本疾患は肺の低形成の合併が多い^{1,11)}。これは、胎生期に胸腔に脱出した腸管が肺の発育を阻害するためである¹¹⁾。本症例では、手術中の所見から左肺の低形成が疑われた。このことから考えると、本症例では胎生期から腸管の一部が胸腔内に脱出していたが、無症

状で経過し、今回の感冒をきっかけに、大部分の腸管が胸腔内に迷入たのではないかと考えられる。術直後の胸部 X 線写真では、左肺下葉に相当する部分には肺の構造を認めなかったが、術後 3 日目の胸部 X 線写真では左胸腔全体に肺紋理が認められ、横隔膜の挙上も認めなかった。これは、胸腔ドレーンを挿入していたため、低形成の左肺が胸腔に合わせて膨張したものと考えられる⁷⁾。

結語

生後、1 歳 2 ヶ月まで順調に発育した女児が感冒様の症状から呼吸困難に陥り、X 線検査にて横隔膜ヘルニアと診断し、緊急手術にて治癒せしめた症例を経験した。乳児期以降の発症では誤診率も高く、乳児期の急性呼吸不全を呈する救急疾患の 1 つとして、横隔膜ヘルニアの可能性を念頭においての診察、治療方針の決定が望まれる。

文献

- 1) 金沢幸夫, 元木良一 : 横隔膜ヘルニア 日本臨床 1996;5:276-9
- 2) Rees JR, Redo SF, Tanner DW : Bochdalek's hernia. A review of twenty-one cases. Am J Surg 1975 ; 129 : 259-61
- 3) 富田貴, 田中卓雄, 井上都喜子, 他 : Bochdalekヘルニアの1乳児例 臨放 1981 ; 26 : 1405-8
- 4) 三好新一郎, 門田康正, 中原数也, 他 : 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 1983 ; 31 : 1587-93
- 5) Hoffman RP, Klein RL, Glazer N, et al : Fortuitous reduction of Bochdalek hernia with positive-pressure ventilation. J Pediatr 1983 ; 103 : 925-7
- 6) Gaisie G, Young LW, Oh KS : Late-onset Bochdalek's hernia with obstruction: radiographic spectrum of presentation. Clin Radiol 1983 ; 34 : 267-70
- 7) Berman L, Stringer D, Ein SH, et al : The late-presenting pediatric Bochdalek hernia: a 20-year review. J Pediatr Surg 1988 ; 23 : 735-9
- 8) Berman L, Stringer DA, Ein S, et al : Childhood

diaphragmatic hernias presenting after the neonatal period.

Clin Radiol 1988 ; 39 : 237-44

- 9) Betremieux P, Dabadie A, Chapuis M, et al : Late presenting Bochdalek hernia containing colon: misdiagnosis risk. Eur J Pediatr Surg 1995 ; 5 : 113-5
- 10) Tarver RD, Broderick LS, Conces DJ Jr. : Reexpansion pulmonary edema. J Thorac Imaging 1996 ; 11 : 198-209
- 11) 中原数也, 岡田正, 島崎靖久, 他 : ボクダレックヘルニアにおける呼吸循環不全 日胸外会誌 1980 ; 28 : 1413-20

ABSTRACT

Late-onset Bochdalek's hernia associated with severe dyspnea

Mineji Hayakawa¹, Satoshi Gando², Yuji Morimoto²,

Yoshihiro Takeyama¹, Kouji Nakamura¹,

Takasi Furune¹, Izumi Matubara¹

¹*Department of Emergency and Critical Care Medicine, Sapporo*

City General Hospital

²*Department of Anesthesiology and Critical Care Medicine,*

Hokkaido University Graduate School of Medicine

Late-onset Bochdalek's hernia is an uncommon disease that is frequently incorrectly diagnosed. We present here a rare case of late-onset Bochdalek's hernia associated with severe dyspnea and cyanosis.

A 14-month-old female infant was admitted to our emergency room with severe dyspnea and cyanosis. A chest radiographs and

computed tomographic (CT) scan revealed a gastrointestinal shadow in her left thorax, and an emergency operation was performed. Bochdalek's hernia was confirmed in the operation. Left lung dysplasia without another malformation was observed. A few days later, the endotracheal tube was extubated, and the patient had an uneventful recovery.

The symptoms, signs, and radiologic findings of patients with diaphragmatic hernia after the neonatal period are difficult to diagnose and may result in misdiagnosis. On examination of infant patients associated with severe dyspnea, a diaphragmatic hernia should be taken into consideration.

Key words : Diaphragmatic hernia, Infant, Dyspnea

Figure Legends

Fig. 1)

Chest radiograph from another hospital.

Bowel herniation into the left hemithorax is presented.

Fig. 2)

Computed tomography on admission.

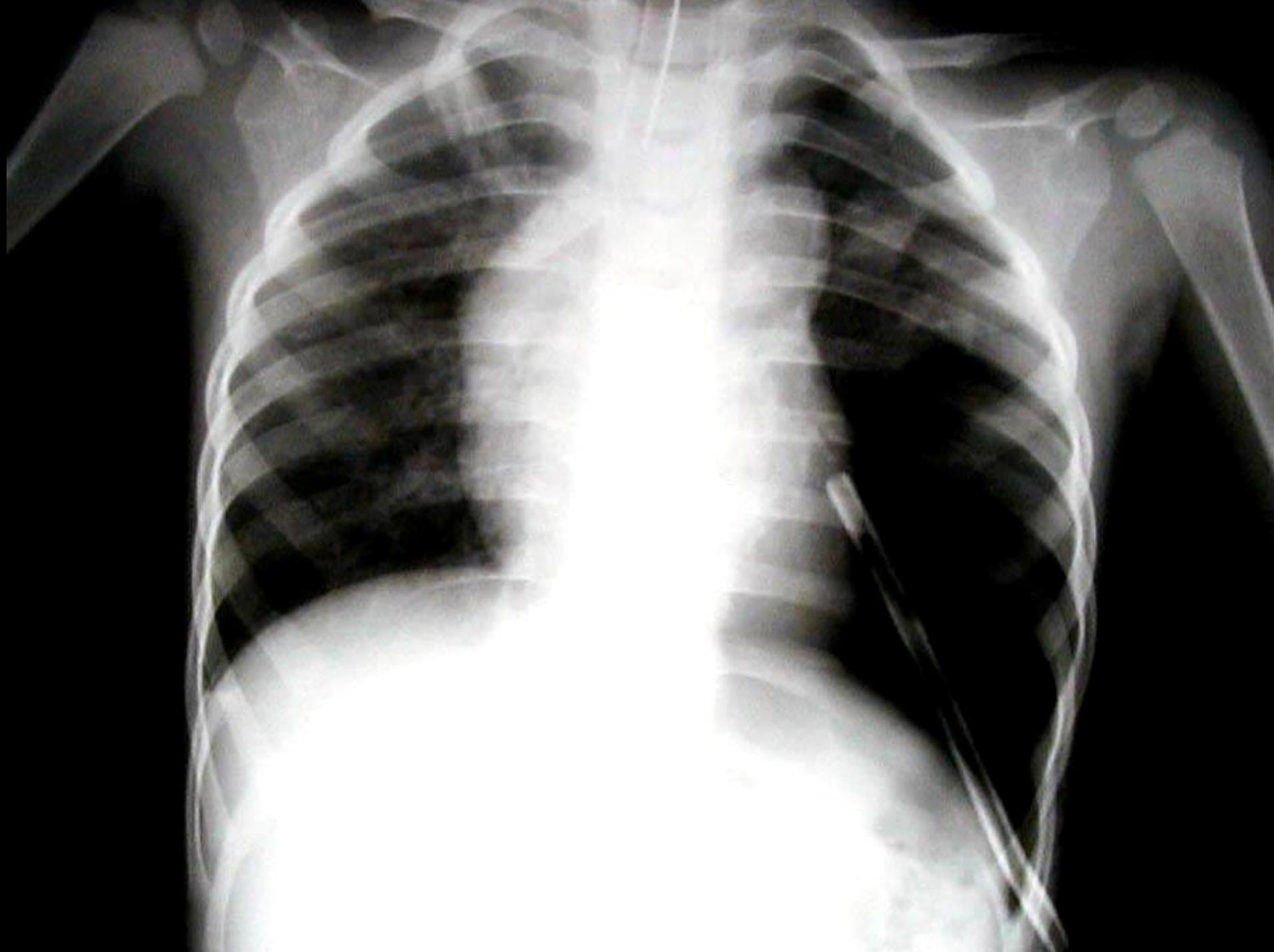
Bowel was detected in the left hemithorax.

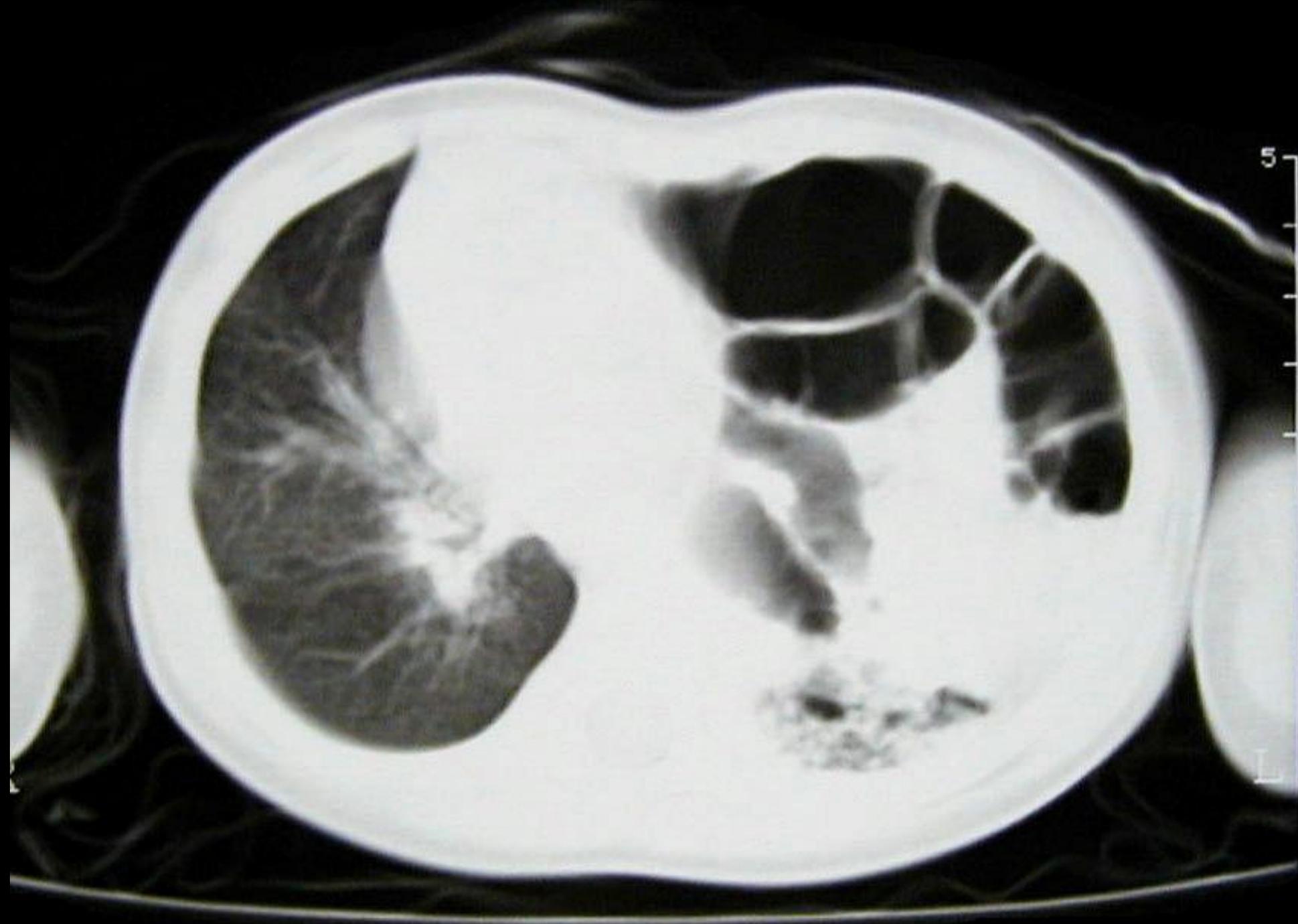
Fig. 3)

Chest radiograph after the operation.

The lung shadow was not detected in the left lower hemithorax.







5