

昭和25年2月1日

寄生性二重奇形(單頭4腕4脚體)の1例

醫學士 渡邊 英一

九州大學醫學部産婦人科學教室(主任 木原教授)

新産兒の奇形中比較的多く見られるのは兔唇・狼咽・口蓋披裂・手指及び足指の奇形・鎖肛等があるが、二重奇形に至つては極めて稀である。私は最近頭部1,上下肢各4という興味ある二重奇形を得たので、茲に1例追加報告する次第である。

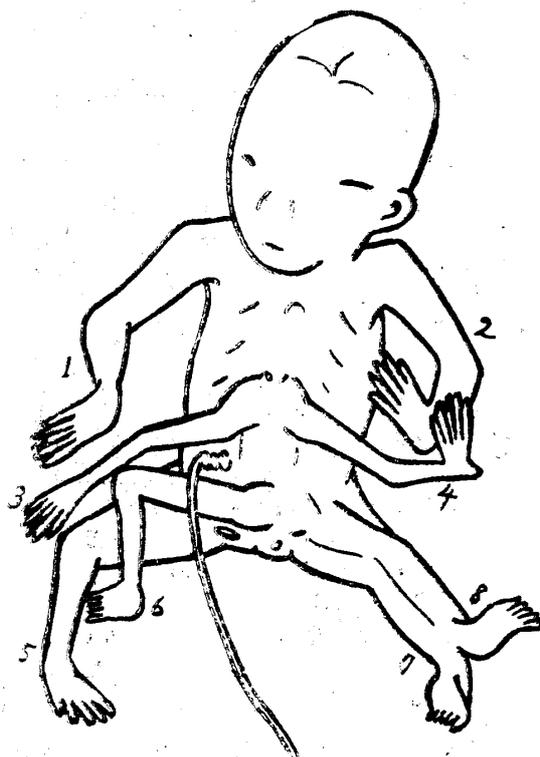
症 例

産婦 野○ハ○エ 23歳 家族歴には父系・母系の何れにも奇形の遺傳的關係はないという。19歳で結婚し、21歳で健康男兒を分娩したほか、既往歴には特記すべきものはない。

今回の妊娠分娩経過 最終月経は昭和23年11月5日～8日、妊娠3カ月頃から時々軽い下腹痛を訴えたのみで、ツワリは殆んどなかつた。4カ月目に血液検査を受けたがワツセルマン反應は陰性であつた。昭和24年5月2日午後7時5分何等原因なく自然破水して分娩が開始した。當時子宮底は臍高にあり、兒心音は聞かれなかつた。内診により兒頭をふれた。陣痛微弱のため用手腹壓を加え午後8時10分第1胎向で娩出したが、胎兒は既に浸軟していた。8時20分胎盤娩出。分娩後5月4日發熱39°C、脈搏102、尿には異常をみとめなかつた。内膜搔爬により凝血と共に胎盤遺殘物をみとめた。術後下腹部を冷し、サルゾール投與によつて翌日は解熱し、以後正常に経過した。

胎兒外表所見(第1圖) 女兒 身長22匁 體重210瓦、最終月経から起算すると7カ月の始めであるが身長、體重等發育程度は5カ月に相當する。頭部には異常はない。上肢(1)(2)は左がやゝ短く、右(1)上腕40匁・前腕2.8匁、左(2)上腕3.5匁・前腕2.2匁で、左右共手部には異常がない。胸部も略々正常であるが、劍狀突起に相當する胸壁から左右に上肢らしきもの(3)(4)が相對する向きに出ており、正常位にある上肢(1)(2)に比して發育悪く、左がやゝ短い。右(3)上腕4.0匁・前腕2.8

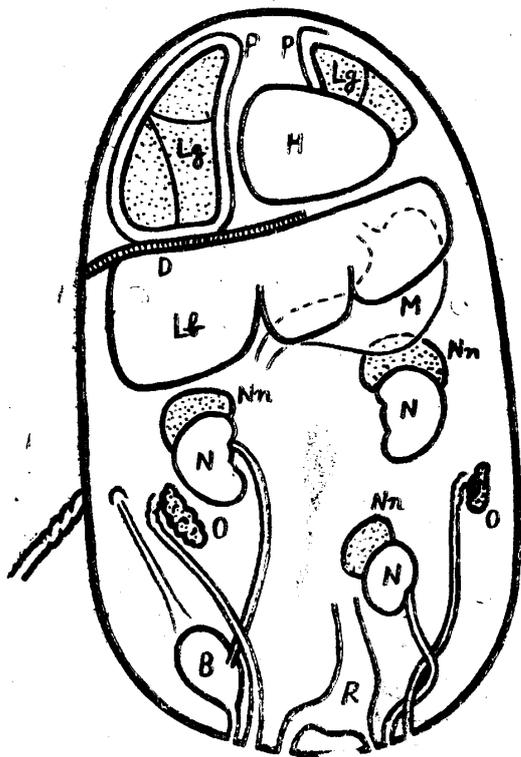
第1圖



匁、左(4)上腕3.5匁・前腕2.0匁で、手部には著變はない。下肢は左右各2本あり、右側では後方肢(5)の方が發育良好で大腿4.5匁・下腿4.2匁、前方肢(6)は大腿4.0匁、下腿3.8匁で、兩肢股間に女性外陰部(陰裂の長さ0.8匁)及び肛門が存する。左側の2肢(7)(8)は發育は略々等しく、共に大腿3.8匁・下腿3.5匁であり、足部を残して全く癒合しているが、皮膚を通して兩肢大腿骨・下腿骨間には骨性の連絡は觸れない。過剰上肢(3)(4)附着部と骨盤部間(3.0匁)には皮膚下に骨格様のものは觸れない。臍帶は1本で長さ19匁、過剰上肢附着部の右下方3匁の部に附着する。胎盤及び臍帶は重量145瓦で、共に特別の變化はない。

レ線像所見 頭部は異常なく、脊柱は1本で略々正中線上にあり、肋骨・肩甲骨・上腕骨・前腕骨等

第2圖



H	心臓	N	腎臓
Lg	肺臓	Nn	副腎
P	胸膜	B	膀胱
D	横隔膜	O	卵巣
Lb	肝臓	R	直腸
M	胃		

も異常はない。剣状突起部から出ている過剰上肢も左右共奇形はない。骨盤骨は化骨途上にある。下肢4本はすべてその大腿骨・下腿骨等に異常はなく、左側の癒合した下肢(7)(8)にもその間に骨性癒合の像はみとめない。又右側で外見上(6)は(5)より發育不良であるが、レ線像をみると兩者の大腿骨・下腿骨等は略々等しく、發育程度に殆んど差はない。

剖検所見(第2圖) 頭蓋内臓器には著變はない、

胸腔内臓器 肝臓上面肝鎌状靱帯から左は横隔膜を缺き、左胸膜も大部分缺如し、左胸膜腔は腹腔と連る。又心嚢を缺き、心臓・左肺臓・肝臓は直接相接する。心臓は心尖部を左に向け横位をとり、之から出る血管系に異常はない。左肺臓及び胸膜腔を有する右肺臓には分葉その他に著變はない。胸腺は肉眼的にはみとめられない。

腹腔内臓器 肝臓は非常に大きく3葉(右葉・中葉・左葉)から成り、腹腔上部を充たし、又前述の如く上面肝鎌状靱帯から左は横隔膜を缺いており左葉は心臓及び胃の間にあつて之等に相接し、心尖部を押上げて横位をとらせる。胃・小腸・大腸はその開口部を除いては異常はない。直腸下端は2つに分れ、1.2 纏を隔て、2個の肛門が存する。脾臓・膀胱には異常はない。

泌尿生殖器系 右腎及び右副腎は正常位にあり、膀胱には右腎からの尿管のみが開き、尿道を経て腔前庭に開口する。膀胱上端からは臍に至る臍尿管索をみとめる。内生殖器は連続した一管をなし、卵管・子宮・腔を區別し得ず、上端卵管系の正中側に右卵巣があり、下端は腔口に開く。外陰部は右側兩下肢(5)(6)の股間にあつて大陰唇・小陰唇・陰核等を區別し得、こゝに前述尿道口・腔口が存し、後陰唇交連から0.3 纏を隔て、前述右肛門が存する。左側では左腎及び左副腎(共に組織學的に確認)が右側と對稱の位置に存するが、尿管らしきものはみとめない。之とは別に第3の腎及び副腎(共に組織學的に確認)が小腸間膜に一部接して腹腔内左下部に存し、之から出る尿管は膀胱らしきものを經ずして直接腎部正中線よりやや左に開口する。左内生殖器は右側と同様一管をなし、卵管・子宮・腔等を區別し得ず、上端卵管系の外側に左卵巣があり、下端は尿道口に接して開口し、右とは別に外陰部を作るが、大陰唇・小陰唇等の發達悪く、ただ陰核らしい突起をみとめるのみである。之に接して前述左肛門が存する。

考 按

二重奇形は一卵性双胎の分離が不完全なものであつて(後述 Schwalbe の分類の如く廣義には分離しているものも含むが、こゝには癒合したものを指す)その頻度は Zangenmeister は全奇形の 0.4%といふ、Schneider によれば 1926~1935 年の 10 年間の分娩例 35000 例中 2 例、Szendi u. Balázs は 50000 例の分娩に 1 例経験したといわれる程稀なもので、わか教室では岩井・鶴池によると最近 16 年 8 月(昭和 6 年から 22 年 8 月まで)間の分娩例 4391 例中高度の外表奇形は 23 例即ち 0.53%であ

るが、すべて単奇形のみで二重奇形は1例もない。

二重奇形の分類法としては J. F. Meckel(1816) 以来 I. Geoffroy Saint-Hilaire(1832), A. Fröster(1855), F. Marchand(1897)等夫々独自の方針にもとづいた分類があるが、彼等の長所をとり専ら形態學的立場から最も系統的に分類し、今日一般に使用されているのは F. Schwalbe(1905)の分類法である。その方針は二重體の各個體が互に離れているか連絡しているかによつて2分し、次に各個體の發育が平等であるか否かによつて更に2分し、連絡した二重體については更にその各々を連絡の部分・方向等によつて細分する。

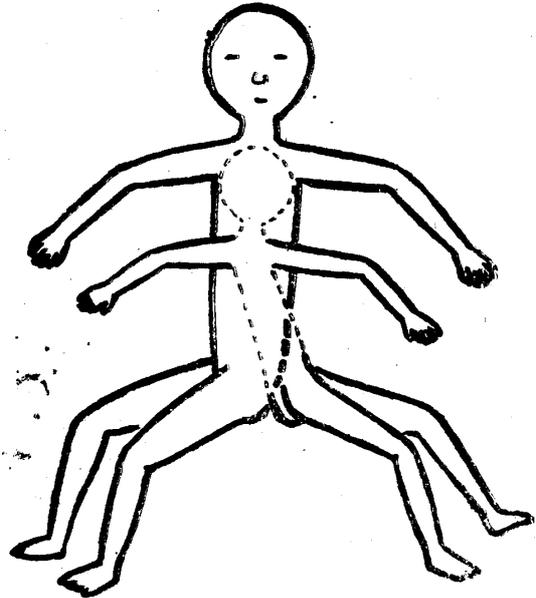
(I) 分離している二重體 Gemini

- (1) 各個體の發育が平等(對稱性)であるもの即ち一卵性双胎で、いわゆる奇形ではない。
- (2) 各個體の發育が不平等(非對稱性)であるもの無心體

(II) 連絡している二重體 Duplicitas

- (1) 各個體の發育が平等(對稱性)であるもの
 1. 腹面で連絡しているもの 前額部癒合體・胸部癒合體等
 2. 背面で連絡しているもの 臀部癒合體等
 3. 體軸端で一直線に連絡するもの 顛頂部頭蓋癒合體・坐骨癒合體等
 4. 側面で連絡しているもの 平行性二重體(側面二重體) 2頭體等
- (2) 各個體の發育が不平等(非對稱性)であるもの 一方の個體の發育が多少なりとも妨げられ、それが寄生體として他の比較的完全な個體(自生體)に附着しているもので 寄生性二重奇形 Duplicitas parasitica ともいう。
 1. 頭部において 寄生性頭蓋癒合體・上顎體等
 2. 胸・腹部において 寄生性胸部癒合體・上腹體等
 3. 骨盤部において 寄生性臀部癒合體・臀肢體等
 又胎兒の腹腔・胸腔その他に不完全な胎兒が封入されていることがあり、胎兒中の胎兒(仔胎) Foetus in foetu という。寄生體

第3圖



の發育が更に悪くなり、遂には外見上單なる腫瘍様の塊としか見えなくなつたものは奇形腫 Teratoma という。

本症例は上述分類法によると寄生性二重奇形であるが、自生體と寄生體との關係は必ずしも明かではない。上肢は先ず明かであるが、下肢4本のうち何れを自生體の下肢と考ふべきかについて注目すべき點は a) 右側下肢(5)(6)は外見上發育は不平等であるが、レ線像をみるとその骨格は略と相等しく、又その股間に外陰部があり、他の外陰部に比して發育良好であること。b) 右側には膀胱が存在するが、左側では尿管が直接開口することc) 臍帶が1本で過剰上肢附着部の右下方3纏にあり胸骨・臍帶附着部・右外陰部が略と同一線上にあり、かつ上述膀胱上端から臍に至る臍尿管索が存すること等である。之等の諸點から上肢(1)(2)及び右側下肢(5)(6)が自生體の四肢で、腰部以下を右に振り、臀部を左側に向ける。寄生體は之に相向つて頭部及び胸部を自生體中に挿入して上肢のみを自生體の劍狀突起部に残し、腰部以下を自生體同様右に振り、臀部を以て自生體臀部に結合したと見做し得る。即ち第3圖の如く腰部以下を右に振つた自生體と、之と同じ形をした發育不良な寄生體とが相向つて結合したような形を呈している。

従つて本例は寄生性劍狀突起臀部癒合體 *Xiphopygopagus parasiticus* というべきであるが、又他方過剰肢のみに着目すれば劍狀突起臀肢體 *Xiphopygomelus* ともいへ得るわけであり、その外形は單頭4腕4脚體 *Monocephalus tetrabrachius tetrapus* である。

かゝる二重奇形の發生に關しては未だ定説はないが、その主な説としては(1)2個又はそれ以上の胎兒原基が互に相癒着して生ずるといふ癒着説(W. Harvey, Lemery, G. Born等), (2)1個の原基からその一部が二分して發育するという分裂説(A. von Haller, H. Spemann)とがあるが、何れも動物實驗を根據とした假説であり、兩者の何れとも決定しかねる現状であり、又之が遺傳的關係についても未だ確實な研究はないようである。而して分離が完全に行われた場合は一卵性双胎となり、癒着分離の程度により種々な二重奇形が形成され、而もその際何等かの原因で一方の發育が悪いと本例の様な寄生性二重奇形が生ずるわけである。それ故に二重奇形(主に對稱性のものについて)は同性で、而も如何なるわけか女性が多く、Fröster は女性においては男性の2倍といふ、Geoffroy は295例の二重奇形中男性92例、女性203例と報告している。人類で最も多く見られるのは胸部癒合體 *Thoracopagus* であるといわれる。二重奇形の分娩前における診断は困難とされ、双胎と診断されることが多い。分娩形式は奇形の形によつて夫々趣を異にするが、G. Veit は分娩障害を基準として産科學的に之を次の如く分類した。

- (1) 不全二重奇形 *Duplicitas incompleta* 身體の一部のみが重複しているもの。
- (2) 連體二重奇形 *Duplicitas apallela* 完全な兩胎が縦軸において癒合したもの
- (3) 竝體二重奇形 *Duplicitas parallela* 完全な兩胎が軀幹を以て癒合したもの

之によれば本例は(1)に該當する。二重奇形はしばしば羊水過多症を合併し、多くは早期に妊娠が中絶する。従つてもし妊娠が繼續し末期に達すれば



當然分娩遷延乃至は不能な場合を生じ、産科學上の意義大なるものがあり得る筈であるが、流早産が多いこと、又たとい末期に及んでも發育不良で重複部横徑が狹小なこと等のため、分娩は遷延しても重篤な障害を來すことは稀である。

結 論

- (1) 本症例は23歳の1回經産婦が流産した妊娠5カ月に相當する單頭4腕4脚體 *Monocephalus tetrabrachius tetrapus* である。
- (2) 剖檢上胸膜・横隔膜・肝臟及び直腸・泌尿生殖器系統に興味ある奇形をみとめる。
- (3) 本例は腰部以下を右に振り臀部を左側に向けた自生體に對して、發育不良な寄生體が相向つて頭部及び胸部を自生體中に挿入し、上肢のみを自生體の劍狀突起部に殘し、腰部以下を右に振りその臀部を自生體中部に癒合したと見做し得る形をとり、Schwalbe の分類に従えば寄生性劍狀突起臀部癒合體 *Xiphopygopagus parasiticus* である。

貴重なる本奇形兒標本を載いた三井田川礦業所病院産婦人科部長小坂平三郎博士、本稿の御指導と御校閲を賜つた恩師木原教授に深甚の謝意を表する。

文 獻

- 1) 根岸：産科と婦人科。11巻7號。—2) 篠原：日婦會誌。34巻12號。—3) 岩井、鶴池：産科と婦人科。15巻12號。—4) 塚原：新産科學。下巻。—5) 緒方、三田村：病理學總論。中巻。—6) F. Schwalbe：Morpholog. d. Missbildung d. Menschen u. Tiere Teil I. —7) L. Aschoff：patholog. Anatom. Bd I. —8) J. C. Edgar：The practice of obstetrics.

(24. 8. 15 受付)