

診 療

超音波検査にて出生前に診断し得た単一心，胸腹結合体例

藤田学園保健衛生大学坂文種報徳会病院産婦人科

¹⁾藤田学園保健衛生大学医学部病理学教室²⁾すみ産婦人科

丹羽 邦明 渡邊 朝香 森川 重敏 千原 啓
 永田 哲朗 米谷 国男 溝口 良順¹⁾ 黒田 誠¹⁾
 笠原 正男¹⁾ 鷺見 敏²⁾

A Case of Fetal Conjoined Twins Diagnosed Prenatally by Ultrasound

Kuniaki NIWA, Asaka WATANABE, Shigetoshi MORIKAWA,

Hiromu CHIHARA, Tetsuro NAGATA, Kunio KOMETANI,

Yoshikazu MIZOGUCHI¹⁾, Makoto KURODA¹⁾, Masao KASAHARA¹⁾and Toshi SUMI²⁾*Department of Obstetrics and Gynecology,**Fujita-Gakuen Health University Banbuntane Houtokukai Hospital, Aichi*¹⁾*Department of Pathology, School of Medicine, Fujita-Gakuen Health University, Aichi*²⁾*Sumi Maternity Clinic, Aichi***Key words:** Conjoined twins • Prenatal diagnosis • Ultrasound

緒 言

超音波検査によつて双胎は妊娠初期より診断可能となつたが，その中には稀に conjoined twins が存在する。われわれは妊娠早期に双胎と診断されていた例が，経時的な超音波的検索にて救命不能な，単一心を持った胸腹結合体と判明し，妊娠22週に優生保護法に基づく中期人工妊娠中絶を行い，剖検し得た例を経験したので，同例の超音波診断の要点および臨床取扱上の問題点について考究した。

症 例

母親：29歳，1妊1産，初診昭和63年9月2日，前回分娩は2年前に正常女兒を自然分娩，既往歴には特記すべきことなく，父母系ともに双胎，先天異常の家系的背景はない。

妊娠経過：妊娠3ヵ月，双胎と診断，経時的な超音波検査により児は互いに胸部と腹部で結合し，単一心でいわゆる胸腹結合体と診断された。

妊娠22週に当大学病院に紹介された。診察後，母親および父親に胎児の状態・予後について告知した。また，経腔分娩は極めて困難で，帝王切開分娩を選択せざるを得ないことを説明したところ，母親は強度の抑うつ状態を呈したため熟慮のうえ優生保護法に基づく人工妊娠中絶を行うことに決定した。

超音波検査（図1）：診断の根拠となつたのは，経時的な観察で毎回双胎の2児はほぼ対称的に胸腹部を相接して位置し，頭部を反屈させていたことであつた。決定的な根拠となつたのは，双胎の胸部をほぼ同レベルでとらえた場合，中央に単一心が存在し，心房は一つ，心室は二つであるのが認められたことであつた。これは後述の心臓部分の剖検所見と一致している。

処置：昭和63年9月5日，妊娠22週3日に入院。ラミナリアおよびオバタメトロにより頸管を開大し，オキシトシン・プロスタグランジン F2 α 点

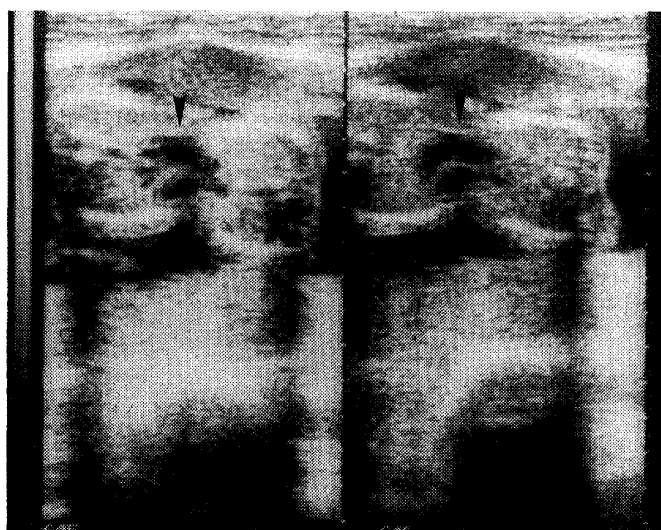


図1 超音波検査所見
両児は胸部で癒合し, その中央には心臓を認める。
(矢印: 心臓)

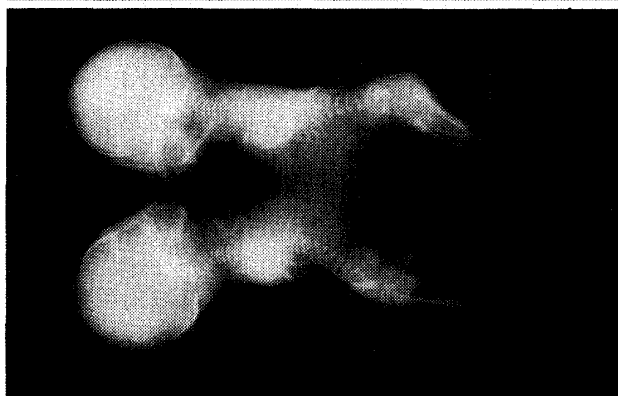
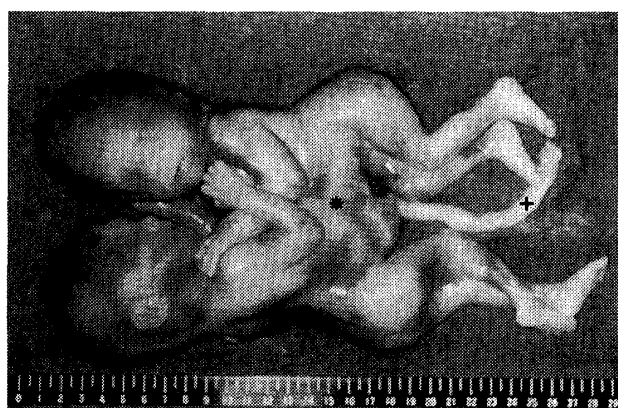


図2
上: 肉眼所見, 両児は互いに向い合い, 胸部から腹部にかけて癒合していた。(※: 癒合部, +: 臍帯)
下: X線所見, 骨格に異常と思われる所見はなかった。

滴で分娩誘導。硬膜外麻酔施行後, 子宮口全開大の時点で母体の精神的負担を除く目的で全身麻酔

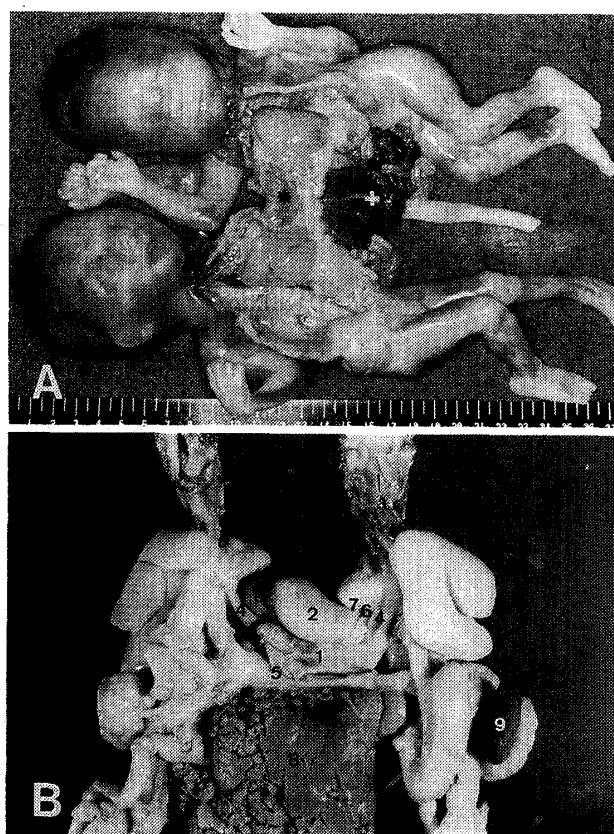


図3 剖検所見 (A)

両児の中心には癒合した心臓および肝臓が認められた。(※: 心臓, +: 肝臓)

剖検所見 (B)

- | | |
|---------------|---------------|
| 1. 癒合した心房 | 6. 肺動脈 |
| 2. 第2児の心室 | 7. 大動脈(胸腺の後部) |
| 3. 第1児の萎縮した心室 | 8. 癒合した肝臓 |
| 4. 上大静脈 | 9. 第2児の脾臓 |
| 5. 下大静脈 | |

に切り替え, 人工破膜と同時に先進二重体をまず頭位で腔内に牽出し, 次に後続二重体は足首をつかみ牽引し, 骨盤位で娩出させた。児は Apgar 0, 死産であつた。

胎児および胎盤所見(図2): 児はともに男児, 体重は計900g。両児は互いに向い合い胸部から腹部にかけて癒合し, 二頭四脚四腕体の対称性二重体であつた。中絶時の皮下出血を頭部, 臀部に認めた以外は外表奇形も見られなかつた。X線上でも骨格に異常な所見はなかつた。胎盤は単一, 230g, 楕円形(21×12cm), 分葉状, 白色梗塞を認めた。臍帯は1本で側方付着, 長さ25cm, 太さ0.8×0.8cm, 両児結合部下縁へ進入し, 血管は臍帯静脈2本, 臍帯動脈3本であつた。

剖検所見(図3): 両児の胸骨は癒合し、共通の胸郭を形成していた。横隔膜は単一で、肺・気管支および胸腺は各々に固有し、両児の中心に癒合した心臓が認められた。心臓は一つの心嚢内に心房が下方、心室が上方と上下反転状となつて位置し、心房は両児の四つの心房をすべて一体とする一心房腔を形成し、心室は両児の心室間に隔壁をもち、両児ともに心室中隔欠損が見られ、心臓全体としては一心房二心室の状態であつた。第2児の心室壁は肥厚しており、第1児は萎縮性の心臓であつた。血管系に関しては肺静脈は2児ともに肺より上行大静脈に流れ、いわゆる総肺静脈還流異常の状態であつた。とくに第2児は左右の肺静脈は相互につながり、それより2本の血管が分岐し、各々が上行大静脈に還流していた。なお、動脈管開存は明らかなものは見られなかつた。心臓弁に関しては、2児ともに肺動脈弁の弁下狭窄が見られた以外はとくに異常を認めなかつた。結合している腹部ではその中心部に2児の癒合した大きな肝臓を認め、それは不規則な陥凹を呈していた。肝臓には2児の下行大静脈から分岐した肝静脈がそれぞれ入り、肝臓より1本の臍帯が出ていた。以上の剖検所見の模式図を図4に示した。脾臓については個々に見られた。脾臓は第2児には認められたが、第1児は無脾症であつた。

以上より、両児は心臓と肝臓を共有している以外は呼吸器系、消化器系、泌尿器系および中枢神経系ともに個々の臓器をもつていた。

考 察

診断方法に関して: これまでは妊娠経過中に二重体を診断することは困難であり、分娩時に至つて分娩障害を来し初めて診断がつく場合が多かつた。妊娠経過中に診断のついた報告では多くは腹部単純X線撮影によるものである²⁾。胸結合体のX線読影の要点として、①同一の胎位、②両児頭の反屈位で相接、③胸郭の異常な接近、④両児の脊椎が八字状または逆八字状の反屈伸展、⑤両児の胎位関係の不変などが挙げられているが、実際何も異常がなければ双胎とだけ診断されて、X線撮影を反復することは少ないであろう。また、X線診断法の最大の弱点は胎児の軟部組織(内臓)、

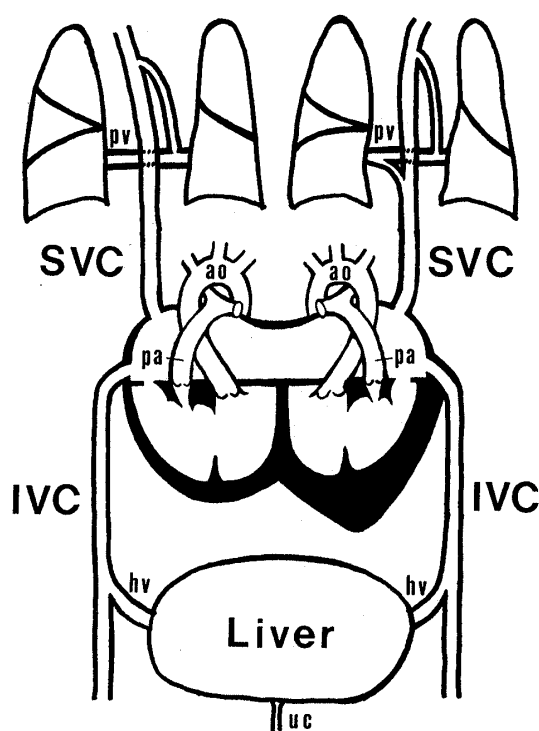


図4 模式図

SVC: 上大静脈, IVC: 下大静脈, ao: 大動脈,
pa: 肺動脈, pv: 肺静脈, hv: 肝静脈, uc: 臍帯

ことに胸結合体において心癒合の状態について観察ができないことにある。最近では外来でも手軽に行える超音波断層法により母児ともに侵襲が少なく早期に双胎が確認できるようになった。産科医が妊娠初期に胎嚢が一つの一絨毛膜性双胎を見つけた時、頻度は少ないが、それが二重体でないことを経時的な超音波検査で確認することが重要である。仮に二重体であればその癒合の部位・程度を走査することが必要であり、とくに頻度の高いと言われている胸結合体³⁾は、心臓の癒合の度合が児の予後判定あるいは分娩方法の選択、さらに分離手術の可能性と密接な関連があるので、超音波検査による正確な診断が重大な意味をもつ。林ら⁴⁾も、胸腹部結合体3例の経験を報告しているが、そのうち2例は超音波検査によつて出生前診断されている。とくに、胸結合体は心臓を共有していることが多く、心臓の数や心房・心室の数などの形態学的な異常を見つけることによつて予後判定が可能となる。したがって、超音波検査の有用性はX線学的検査のそれをはるかに凌駕していると思われる。そのほかには胎児造影、胎児心

電図が用いられるが補助的な検査に過ぎない。

分娩様式について：多くは流早産してしまうが、妊娠末期まで経過した例については形態的に分娩障害を来すことになり、ほとんどの場合帝王切開術の適応となる。胸結合体はとくに妊娠末期まで経過することが多く、帝王切開術および胎児縮小術の適応となりやすい⁴⁾⁵⁾。分離手術で予後が期待できる二重体胎児の分娩は当然帝王切開を選択することになる。本症例では妊娠22週の中期中絶であり、できるだけ経腔的に母体に侵襲を加えないように、二重体胎児を娩出したいという考えから、ラミナリアおよびメトロイリントルにより頸管を充分開大後、硬膜外麻酔と全身麻酔の併用によつて軟産道を弛緩させ、人工破膜と同時に用手的に胎児を娩出させることができた。

児の予後について：予後は極めて不良である。大部分は流早産か胎児死亡で終わり⁶⁾、妊娠末期まで発育したとしても児は分娩中または分娩直後にほとんどが死亡している³⁾。二重体の中でも胸結合体は比較的妊娠末期まで妊娠が継続すると言われているが、しかし結合したまま娩出され生存したとしても、その分離手術は極めて困難である。1960年に Köning が分離手術に成功して以来、何例かが試みられたがその成功例は少ない。本邦では、1971年 沢口・秋山らによる Xiphophthalmopagus の分離手術成功により 6 例の成功例が報告されている⁷⁾。しかし、胸結合体で心癒合が認められる症例に関しては成功例がない¹⁾。本症例のように両児の心癒合が強く分離手術の適応がない症例もあり、実際は共有する心臓や脳などの

重要な臓器の結合の程度によりその適応が左右されると考えられる。

最近、周産期管理が進歩し、このような重症奇形をもつ児を最良の状態で娩出させることが可能となつたが、現実の問題として分離不可能な予後不良の例もあり、産科医がこのような症例に遭遇した時、大きな dilemma に陥ることになる。小児科医、小児外科医、心臓外科医などとの正確な診断、予後および治療に関して集学的な立場から方針を決めることが重要であり、今後に大きな問題を残した症例と思われる。

なお、本論文の要旨は第48回日本産科婦人科学会愛知地方部会学術講演会にて発表した。

文 献

1. 林 富, 大井龍司, 千葉庸夫, 内田 孝, 澤 直哉, 鈴木知信, 望月 泉: 胸腹部重合体 3 例の経験. 日小児外誌, 23: 109, 1987.
2. 木村 弘: 胸結合体の臨床統計的観察とその妊娠中のレントゲン診断について. 臨婦産, 21: 793, 1967.
3. 松崎 浩, 石井千勝, 山岡成章, 田島政人, 武田重三: 対称性二重奇形(胸腹結合体)の 1 例. 産と婦, 47: 109, 1980.
4. 森山 豊: 先天奇形の統計的観察. 産婦の世界, 16: 139, 1964.
5. 佐藤正憲: 我が国の先天奇形に関する統計的研究. 日産婦誌, 18: 74, 1966.
6. 鈴木良久: 本邦文献に依る奇形児の産科学的統計観察(第 11 報). 二重体に就て. 北海道医誌, 28: 344, 1953.
7. 浮田昌彦, 兼吉 章, 山田順常: 二重結合体の分離手術. 産婦治療, 17: 308, 1968.

(No. 6809 平 2・5・12 受付)