

外科的に整復した先天性大静脈孔ヘルニアの犬の1例

岩田徳余^{1)†} 三木伸悟¹⁾ 秋山今日子¹⁾ 岩永優斗¹⁾ 神先芽衣¹⁾田中聖晃¹⁾ 大谷祐介²⁾ 真下忠久¹⁾

1) 京都府 開業 (舞鶴動物医療センター: 〒625-0037 舞鶴市浜町 8-22)

2) 京都府 開業 (いちご動物病院: 〒624-0816 舞鶴市伊佐津 354-4)

(2020年3月6日受付・2020年10月11日受理)

要 約

症例はマルチーズ、避妊雌、4歳齢で急性の発咳を呈し来院した。各種検査から外傷性横隔膜ヘルニアを疑い、外科手術を実施した。手術時の所見は、横隔膜に欠損はなく、肝臓内側右葉が大静脈孔を介して胸腔に連絡していた。先天性大静脈孔ヘルニアと診断し、血流を確認するため、術中に造影CT検査を実施したところ、胸腔内に脱出した肝臓へと連絡する肝静脈、門脈が認められた。脱出した肝臓を温存するため、整復手術を実施した。術後87日目に実施した造影CT検査では整復した肝臓は正常位置に存在しており、同時に肝生検を実施したところ組織学的にも正常であった。横隔膜ヘルニアの鑑別診断として大静脈孔ヘルニアを考慮し、腹腔内に完納するのか肝葉切除を実施するのか決定するために、術前の造影CT検査が重要であると考えた。——キーワード：大静脈孔ヘルニア、造影CT検査、犬。

-----日獣会誌 73, 735～739 (2020)

横隔膜ヘルニアとは、胸腔と腹腔の隔壁である横隔膜を通過し、腹腔内臓器が胸腔内に脱出した状態を指し、先天性または後天性に発生する [1]。犬の先天性横隔膜ヘルニアは、胎生期に起こる横隔膜の癒合不全が要因であり遺伝子の関与が示唆されているが、詳細は不明な点も多い [2]。通常胸腔と腹腔は胎生初期には連続しているが、胎生8週でいくつかの囊の融合した膜となり分離される。人の先天性横隔膜ヘルニアでは、後外側から延びる胸膜裂孔膜が形成不全を起こし、裂孔を生じることで発生すると考えられている [3]。原因としてレチノイン酸合成経路の障害や染色体異常が関与すると示唆されているが [4]、明らかな病因は解明されていない。後天性の横隔膜ヘルニアの多くは、交通事故などにより腹腔内圧の上昇によって横隔膜が裂開して発症する。症状は、無症状から重度な呼吸困難を呈するものまでさまざまである。人では、長期間無症状を示し偶発的に発見された報告がある [5]。

また、横隔膜には大静脈孔、大動脈裂孔及び食道裂孔が存在し、食道裂孔ヘルニアの報告は複数あるが [6, 7]、大静脈孔ヘルニアの報告は人及び獣医学領域のどち

らにも少なく [8-10]、比較的まれな病態と考えられる。

今回急性の発咳を主訴に来院した先天性大静脈孔ヘルニアの犬に対し、各種検査から胸腔内へ脱出した肝臓の機能を温存できると考え、外科手術にて整復した。その後、合併症もなく良好な経過を得たためその概要を報告する。

症 例

4歳齢、避妊雌のマルチーズが、飼い主の帰宅後から続く急性の発咳を主訴に来院した。飼い主からの聴取では、外傷や交通事故の既往歴はなかった。

一般身体検査所見：体温は39.0℃、浅速呼吸(40回/分)を認めたが、可視粘膜色の異常は認めなかった。乾性の発咳であり、頻度は時折であった。来院時のSpO₂は98%であった。

血液検査所見：肝酵素 (ALP 490U/l, ALT 113U/l), CRP (1.3mg/dl), Na (148mEq/l), Cl (116mEq/l) の上昇を認めた。

動脈血ガス分析所見：動脈血二酸化炭素分圧 (25mmHg) の低下を認めた。

† 連絡責任者：岩田徳余 (舞鶴動物医療センター)

〒625-0037 舞鶴市浜町 8-22 ☎ 0773-63-4690 FAX 0773-63-4691

E-mail: tokuver2over109453@yahoo.co.jp

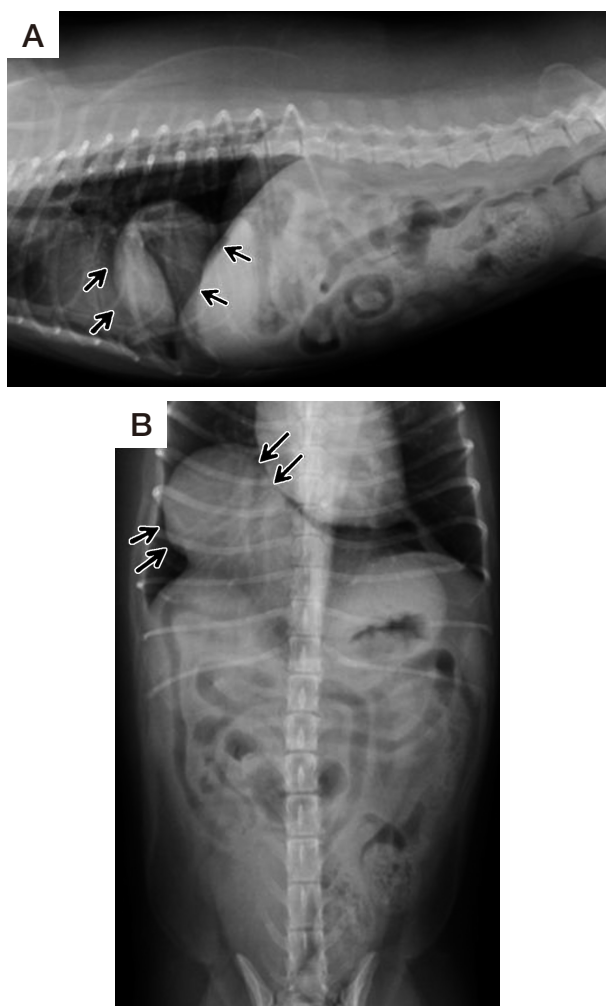


図1 初診時胸腹部単純X線画像
A: 右側横臥位 (LR)
B: 伏臥位 (DV)
LRでは腹側, DVでは右肺後葉領域に不透過性陰影が認められる (矢印).

胸腹部単純X線検査所見: 右側横臥位 (LR) にて後大静脈腹側, 伏臥位 (DV) では右肺後葉付近にX線不透過性陰影を認めた (図1). 横隔膜ラインの不整は認めなかった. その他の肺野の異常は認められなかった.

超音波検査所見: 肝臓実質と類似したエコー源性の軟部組織を胸腔内に認めた.

飼い主帰宅後から認められた急性の症状であり, 各種検査所見から外傷性横隔膜ヘルニアと仮診断し, 外科手術を実施した.

手術所見: 腹部正中切開を実施し腹部から横隔膜を確認した. 横隔膜に欠損はなく外傷の癍痕は認めなかった. 胸骨切開を加えると, 肝臓内側右葉が大静脈孔を介して胸腔内へと連絡していた (図2). 胆嚢の位置や色調は正常であった. 大静脈孔に損傷部位, 明らかなヘルニア孔及び周辺の組織の脆弱さは認められなかった.

診断: 手術所見から本症例を先天性大静脈孔ヘルニア

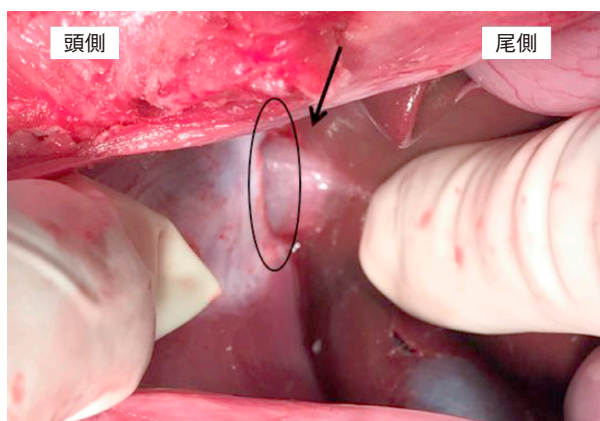


図2 手術所見
肝臓内側右葉 (矢印) は大静脈孔 (丸) を介して胸腔に連絡していると推測される.



図3 造影CT画像 (冠状断面像)
大静脈孔を介して胸腔内に脱出した肝臓内側右葉 (矢印).

と診断した.

胸腔内肝臓の肝静脈や門脈の走行を確認するため, 一時閉創し造影CT検査を実施した.

造影CT検査所見: CT撮影装置は4列マルチスライスCT (Asteion Super4, 東芝メディカルシステムズ(株), 栃木) を用い, 血管造影剤としてイオパミドール (600mgI/kg) を使用した. 静脈相で大静脈孔を介して横隔膜を通過し胸腔内肝臓と連絡する肝静脈, 門脈を確認した (図3). CT値は腹腔内肝臓と比べて差異はなく, 血管走行から内側右葉と判断した. 右肺後葉は, 脱出した肝臓に圧迫されていたが正常に拡張していた. また, 肺後葉において間質パターンと気管支パターンを認めた.

手術時所見: 造影CT検査所見から, 胸腔内肝臓の血

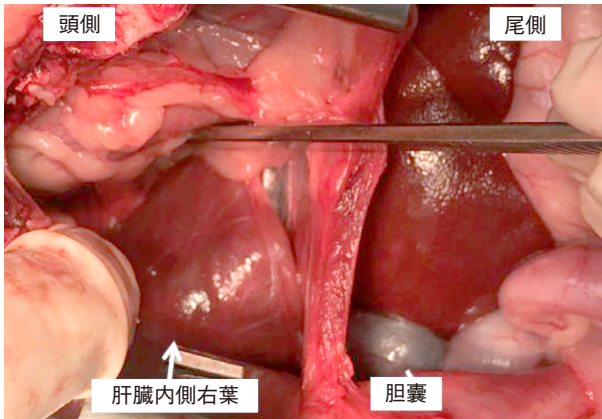


図4 手術所見
横隔膜、後大静脈との癒着を剥離した肝臓内側右葉 (矢印).

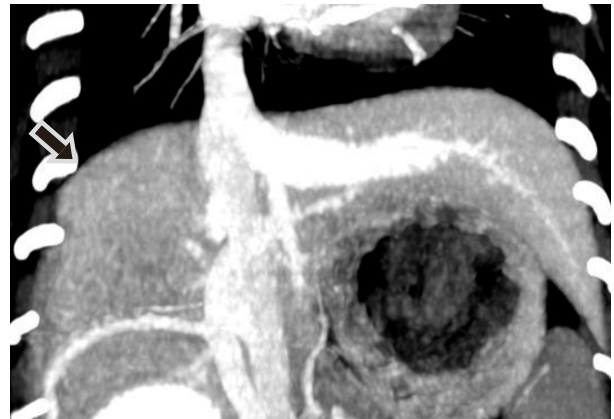


図6 第87病日造影CT画像 (冠状断面像)
腹腔内の正常位置に存在する肝臓内側右葉 (矢印).

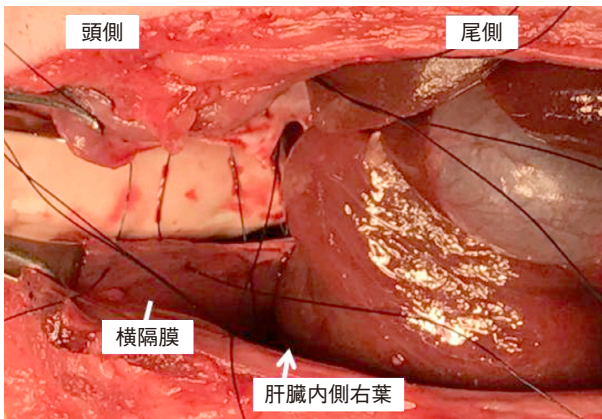


図5 手術所見
腹腔内へ整復された肝臓内側右葉 (矢印).

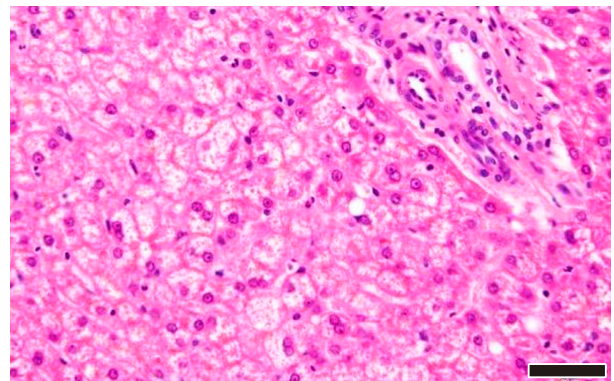


図7 病理組織検査所見
炎症性細胞の浸潤は認められない (Bar=50µm).

流を確認し、機能を温存できると考えたため、肝葉切除ではなく腹腔内への整復を実施した。横隔膜を腹側から大静脈孔まで切開した。胸腔内に横隔膜と後大静脈に癒着した肝臓を確認し、癒着部分は滅菌綿棒を用いていねいに剥離した後(図4)、腹腔内に整復した(図5)。その後、横隔膜を再建し胸腔ドレーンを設置し定法に基づき閉鎖した。

治療経過:術後はICUにて管理した(酸素濃度40% O₂)。入院中は静脈内輸液とともにセファゾリンナトリウム(20mg/kg BID)、プブレノルフィン(0.02mg/kg BID)を静脈内に投与した。術後2日目より胸腔ドレーンの排液はなくなった。術後4日目、発咳は残るものの一般状態は良好であり、ルームエアで管理可能であった。胸部X線検査では軽度気管支パターンが認められた。胸腔ドレーンを抜去し、セファレキシシン(15mg/kg BID)、アミノフィリン(5mg/kg BID)を処方し退院した。術後13日目に発咳はなくなり投薬を中止した。術後87日目、整復後の肝臓の構造や門脈、

静脈の走行を確認するため、造影CT検査及び超音波ガイド下でTru-cut針(14ga×9cm)を使用して胆嚢や肝葉の位置を確認し、肝生検を実施した。

血液検査所見:術前に上昇していた肝酵素の上昇は認められなかった(ALP 96U/l, ALT 54U/l)。

造影CT検査所見(術後87日目):整復した肝臓内側右葉は腹腔内の正常位置に認められた。整復前より門脈枝はやや不明瞭ではあるが(図6)、他の肝葉とのCT値に差異は認められなかった。また、右肺後葉は正常に拡張していた。

病理検査所見:中心静脈及び門脈索が規則的に配列し、小葉構造や肝三つ組構造が明瞭に確認された。小葉間胆管内に胆汁が貯留する像は確認されず、肝細胞間で胆汁栓形成は認めなかった。また、炎症細胞浸潤、線維増生及び胆管増生も確認されなかった。整復された内側右葉の構造は、正常のものとは比べて差異は認めなかった(図7)。

考 察

本症例は横隔膜に外傷による破損、癒着の所見が認め

られず、特に既往歴がないことより先天性横隔膜ヘルニアであると判断した。先天性横隔膜ヘルニアは発生異常によって先天的に生じた横隔膜の欠損孔を通じて、腹腔内臓器が胸腔内へ脱出する病態である [2]。犬で過去に数例報告がある異所性肝とは [11]、胸腔内と腹腔内の肝臓に連続性があることから区別できる [12]。

人の先天性横隔膜ヘルニアは欠損孔の位置によって、Bochdalek (70~75%)、Morgagni (23~28%)、Central (2~7%) に大別され、欠損孔の位置や大きさ、脱出する臓器によって発症時期や臨床症状は大きく異なっている [13]。本症例はヘルニア門の位置から Central に分類される。Central に分類された症例の報告は少なく [14]、この部位は発生学的に横隔膜形成の最後に閉鎖される [15]。本症例も、先天的にこの部位の閉鎖不全があったと考えられる。

本症例は、発咳を主訴に来院しており、大静脈孔ヘルニアの臨床症状として過去に報告されている活動性の低下や食欲不振 [9, 10] は認められなかった。しかし、発咳は過去の大静脈孔ヘルニアの症例では報告がなかった。本症例には大静脈孔に明らかなヘルニア孔や組織の脆弱さは認められなかった。したがって、先天的に存在していた欠損孔から、腹圧上昇によってヘルニアが生じ、脱出した肝葉が肺野を圧迫したとは考えられない。また、本症例は造影 CT 検査で気管支パターンや間質パターンが認められており、気管支炎が起っていたと考えられる。以上から、本症例の発咳と大静脈孔ヘルニアとの関連性は低く、気管支炎との関連性の方が疑われる。人では、生後 8 週齢以降に診断される遅発性先天性横隔膜ヘルニアが、学校の検診時に偶発的に発見された報告がある [5]。本症例も 4 歳齢で診断された遅発性先天性横隔膜ヘルニアであり、大静脈孔ヘルニアが偶発所見である可能性も否定できない。

大静脈孔ヘルニアは、単純 X 線検査や超音波検査だけでは胸腔内腫瘍と誤診されたケースがあり、診断における造影 CT 検査の有用性が以前から報告されていた [10]。本症例は術前の胸腹部単純 X 線検査、超音波検査で外傷性横隔膜ヘルニアを疑っていた。そのため、先天性疾患を鑑別疾患として考慮しておらず、造影 CT 検査を手術前に実施しなかった。今後、外傷歴がなく緊急性が低い症例では、診断の妥当性と手術法の決定のためにも鑑別疾患として大静脈孔ヘルニアを考慮する必要がある。そして、術前検査としての造影 CT 検査実施の重要性が再認識された。

本症例では、術後 87 日目に肝生検を実施しているが、検査の正確さや症例への負担を考慮すると、手術中に実施すべきであった。しかし、手術時に脱出した肝臓を本来の位置へ整復することを考えるあまり、正常構造を確認するために材料採取をするという考えに及ばなかつ

た。組織構造や大静脈孔ヘルニアの影響を確認する際は、手術中の肝生検を実施するべきである。また、超音波下で胆嚢や肝葉の位置を確認しながらいねいに実施したが、採取された組織が本当に内側右葉であるか確定できないことから、肝臓に対する評価に関しては留意が必要である。

先天性横隔膜ヘルニアが成長後に発見された場合、手術適応であるか十分に考慮する必要がある。人では脱出していた臓器が成人後に絞約し緊急手術を必要とした報告 [16] や、食欲不振、嘔吐といった非特異的的症状であるため、診断が遅れることにより死亡した報告 [17] があり、偶発所見であっても注意が必要である。過去の報告 [9] では脱出した肝臓を摘出しているが、術前の血液検査や術中の造影 CT 検査の所見から、胸腔内肝臓の機能を温存できると考えたため、腹腔内への整復を実施した。本症例は、術前の血液検査で軽度の肝酵素の上昇が認められており、肝臓の一部がヘルニアしたことで肝障害が起こっていたと考えられる。術前の血液検査で認められた本症例の軽度の肝酵素の上昇が、術後正常化していたことも、手術の妥当性を示していると考えられる。

明らかな欠損孔が認められないにもかかわらず、肝血流が存在する内側右葉が、大静脈孔を介して胸腔内に脱出している珍しい症例ではあったが、整復術による再拡張性肺水腫や気胸のような合併症 [1] もなく、良好な経過を得た。

今後は横隔膜ヘルニアの鑑別診断として、異所性肝臓と併せ大静脈孔ヘルニアも考慮する必要がある。さらに、腹腔内に完納するのか肝葉切除を実施するのか決定するために、術前の造影 CT 検査の重要性が再認識された。

最後に、本症例の画像診断に対してご助言いただいた新潟動物画像診断センター坂大智洋代表取締役、詳細な病理組織学的所見をくださったマルビー・ライフテック(株)阿野直子氏に深謝する。

引用文献

- [1] Fossum TW: 下部呼吸器の外科, スモールアニマル・サージェリー, 若尾義人他訳, 第3版, 1017-1020, インターズー, 東京 (2008)
- [2] Valentine BA, Cooper BJ, Dietze AE: Canine congenital diaphragmatic hernia, *J Vet Intern Med*, 2, 109-112 (1988)
- [3] Sugg WL, Roper CL, Carlsson E: Incarcerated bochdalek hernias in the adult, *Ann Surg*, 51, 847-851 (1964)
- [4] Montedonico S, Nakazawa N, Puri P: Congenital diaphragmatic hernia and retinoids: searching for an etiology, *Pediatr Surg Int*, 24, 755-761 (2008)
- [5] 古川泰三, 木村 修, 樋口恒司, 文野誠久, 青井重善, 田尻達郎: 当院における遅発性先天性横隔膜ヘルニア症例の検討, *日本小児外科学会雑誌*, 49, 975-980 (2013)

- [6] Callan MB, Washabau RJ, Saunders HM, Kerr L, Prymak C, Holt D : Congenital esophageal hiatal hernia in the Chinese shar-pei dog, *J Vet Intern Med*, 7, 210-215 (1993)
- [7] Ellison GW, Lewis DD, Phillips L, Tarvin GB : Esophageal hiatal hernia in small animals: literature review and a modified surgical technique, *J Am Anim Hosp Assoc*, 23, 391-399 (1987)
- [8] Calvin SH Ng, Lee TW, Wan S, Yim AP : Caval foramen hernia masquerading as a thoracic mass, *Can J Surg*, 49, 64-65 (2006)
- [9] 野中雄一, 高島一昭, 山根 剛, 山根義久 : 大静脈孔ヘルニアの犬の一例, *動物臨床医学*, 17, 81-85 (2008)
- [10] Kim JH, Kim SY, Jo JE, Lee SG, Eom KD : Radiographic and computed tomographic features of caval foramen hernias of the liver in 7 dogs: mimicking lung nodules, *J Vet Med Sci*, 78, 1693-1697 (2016)
- [11] 一二三達郎, 真下忠久, 原崎裕介, 阿野直子, 野村耕二, 安田 準, 川口博明, 三好宣彰 : 犬の胸腔内異所性肝の1例, *日獣会誌*, 68, 64-67 (2015)
- [12] Collan Y, Hakkiluoto A, Hastbacka J : Ectopic liver, *Ann Chir Gynaecol*, 67, 27-29 (1978)
- [13] Okay ST, Sancar S, Ozcakir E, Varal IG, Dogan P, Kaya M : The management of Bochdalek congenital diaphragmatic hernia: a single center experience and review of the literature, *Eur Res J*, 6, 138-144 (2020)
- [14] Lima M, Al-Taher R, Gargano T, Maffi M : Thoracoscopic diagnosis and repair of central congenital diaphragmatic hernia in a neonate: a case report of a rare entity, *J Pediatr Surg*, 21, 26-28 (2017)
- [15] 升田晃生, 小棚木 均, 宮澤秀彰, 澤田俊哉, 工藤和大, 小棚木 圭 : 絞扼性腸閉塞を伴った特発性右横隔膜ヘルニアの1例, *日本臨床外科学会雑誌*, 80, 303-309 (2019)
- [16] 増田 崇, 桑原亮彦 : 閉塞性黄疸を合併した成人型 bochdalek 孔ヘルニアの1手術例, *日本消化器外科学会雑誌*, 40, 1690-1693 (2007)
- [17] Byard RW, Bourne AJ, Cockington RA : Fatal gastric perforation in a 4-year-old child with a late-presenting congenital diaphragmatic hernia, *Pediatr Surg Int*, 6, 44-46 (1991)

A Dog with Congenital Caval Foramen Hernia

Tokuyo IWATA^{1)†}, Shingo MIKI¹⁾, Kyoko AKIYAMA¹⁾, Yuto IWANAGA¹⁾, Mei KANZAKI¹⁾, Kiyooki TANAKA¹⁾, Yusuke OTANI²⁾ and Tadahisa MASHITA¹⁾

1) *Maizuru Animal Medical Center, 8-22 Hamamachi, Maizuru, 625-0037, Japan*

2) *Ichigo Animal Hospital, 354-4 Isazu, Maizuru, 624-0816, Japan*

SUMMARY

A case of a four-year-old spayed female Maltese presented with an acute cough. In a variety of examinations, traumatic diaphragmatic hernia was suspected, and surgery was performed. During surgery, visual inspection of the diaphragm confirmed intact with normal-sized vena caval foramen and a herniation of the entire right medial liver robe through the vena caval foramen into the right thoracic cavity. The diagnosis was a caval foramen hernia. Contrast-enhanced computed tomography (CT) revealed a herniation of the entire right medial liver lobe with normal branches of hepatic veins and portal veins, and surgical repair of the hernia was attempted. After successful surgical repair, the biopsied specimen from the right medial liver lobe was revealed to be histologically normal. Contrast-enhanced CT is considered as a useful diagnostic modality for determining treatment in dogs. — Key words : caval foramen hernia, contrast-enhanced computed tomography, dog.

† *Correspondence to : Tokuyo IWATA (Maizuru Animal Medical Center)*

8-22 Hamamachi, Maizuru, 625-0037, Japan

TEL 0773-63-4690 FAX 0773-63-4691 E-mail : tokuver2over109453@yahoo.co.jp

J. Jpn. Vet. Med. Assoc., 73, 735 ~ 739 (2020)