



A Spigelian hernia-cryptorchidism Syndrome : Case Report

สุพัตรา ทีฆะธาดา,พบ.*
Supatra Teekatada,MD.*

บทคัดย่อ

Spigelian hernia (SH) คือไส้เลื่อนช่องท้องที่เกิดจากความผิดปกติในตำแหน่ง Spigelian fascia ซึ่งพบได้น้อยมากในเด็ก ยิ่งถ้าพบร่วมกับอัณฑะไม่ลงถุงมาแต่กำเนิดจะพบได้น้อยมากๆ กลุ่มอาการนี้ประกอบไปด้วย ความผิดปกติของ Spigelian fascia, อัณฑะไม่ลงถุงข้างเดียวกัน, การไม่มีของ gubernaculum และ inguinal canal ซึ่งการไม่มีinguinal canal จะทำให้การผ่าตัดมีความยุ่งยากขึ้นในขั้นตอนการวางอัณฑะลงใน scrotum

รายงานนี้เป็นรายงานผู้ป่วยเด็กชายอายุ 2 เดือน มาด้วย Spigelian hernia ข้างซ้ายและอัณฑะไม่ลงถุงทั้งสองข้าง รักษาด้วยการผ่าตัดปิดช่องไส้เลื่อน, ปิดdefectขนาดใหญ่ด้วย polypropylene mesh และอัณฑะซ้ายที่พบอยู่ในถุงไส้เลื่อนนั้น ถูกลำมาวางในscrotum โดยการทำช่องขึ้นมาใหม่ระหว่าง inferior epigastric vessels และ pubic tubercle หลังผ่าตัดผู้ป่วยรายนี้ไม่มีปัญหาสามารถกลับบ้านได้ในวันถัดมา ส่วนอัณฑะไม่ลงถุงข้างขวาที่คลำได้ในinguinal canalสามารถรอได้จนถึงอายุที่เหมาะสมในการทำ orchiopexy

ABSTRACT

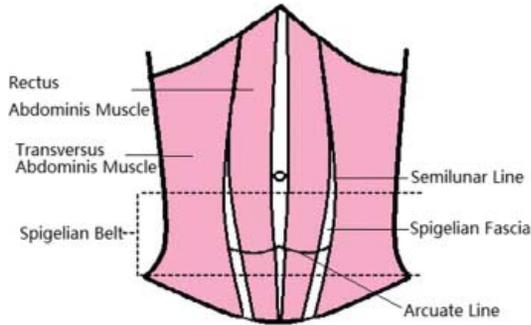
Spigelian hernia (SH) is a ventral interstitial hernia through a defect in the Spigelian fascia which rarely seen in pediatric age group. SH with undescended testis is considered to be a congenital condition and extremely rare. This association may be a distinct clinical syndrome of the defect in the Spigelian fascia, ipsilateral undescended testis, absence of gubernaculum and inguinal canal. The absence of the inguinal canal can make surgical complicated to place the undescended testis into the scrotum. A 2 - month-old boy presented with left Spigelian hernia and bilateral undescended testes. The SH sac was closed and the large defect was repaired with polypropylene mesh. The left undescended testis which was present in Spigelian hernia sac was brought to scrotum via the neo-tunnel medial to inferior epigastric vessels and just lateral to pubic tubercle. The patient was discharged in the next day with uneventful and the right undescended testis which was palpated at inguinal area without any abdominal hernia can be waited until the appropriate time to do orchiopexy.

Keywords : Spigelian hernia (SH), cryptorchidism syndrome, Orchiopexy



บทนำ

Spigelian hernia คือภาวะไส้เลื่อนที่ผ่านออกมาที่ Spigelian fascia ซึ่งเป็นชั้น aponeurosis ระหว่าง rectus muscle และ semilunar line ดังรูปที่ 1



รูปที่ 1 Spigelian fascia และลักษณะทางกายวิภาค Van den Spiegel

ศัลยแพทย์ชาวเบลเยียม ได้รายงานลักษณะทางกายวิภาคของ fascia ระหว่าง lineasemilunaris ซึ่งเปลี่ยนจากกล้ามเนื้อ transversus abdominis เป็น aponeurosis โดยมีขอบข้างเป็น rectus muscle ซึ่งตอนหลังได้ชื่อว่า Spigelian fascia ตามชื่อผู้รายงาน^{1,2} ในปี 1764 Josef Klinkosch เป็นคนแรกที่รายงานไส้เลื่อน Spigelian ว่าเกิดจากช่องโหว่ของ semilunar line²

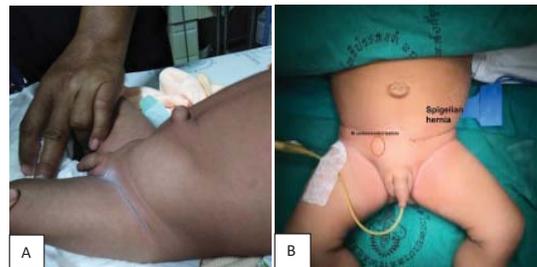
Spigelian hernia พบประมาณ 1-2% ของบรรดาไส้เลื่อนช่องท้องทั้งหมดและพบบ่อยในระดับของ semicircular line (arcuate line of Douglas) มีผู้รายงานว่าพบตั้งแต่เกิด ครั้งแรกในปี 1935³ ตั้งแต่นั้นมาก็มีรายงานการพบในผู้ป่วยเด็กจนถึงปัจจุบันโดยรวมทั่วโลกไม่ถึง 80 ราย^{3,4,5} มีรายงานงานโดย Raveenthiran พบว่า Spigelian hernia ที่พบร่วมกับอัมชะไม่ลงข้างเดียวกันเป็นลักษณะของ syndrome ที่พบร่วมกัน^{6,7} Rushfeldt และคณะ เสนอเพิ่มว่าการไม่มีอยู่ของ gubernaculum และ inguinal canal เป็นอีก² ลักษณะที่พบเพิ่มและจัดเป็นกลุ่มอาการที่เกิดขึ้นใหม่เรียกว่า "Spigelian hernia-cryptorchidism syndrome"⁸

รายงานฉบับนี้ได้รายงานผู้ป่วยเด็กชายอายุ 2 เดือน มาด้วยก้อนไส้เลื่อน Spigelian ด้านซ้ายและอัมชะไม่ลงข้างซึ่งเข้าได้กับลักษณะของกลุ่มอาการนี้

รายงานผู้ป่วย

ผู้ป่วยเด็กชายอายุ 2 เดือน มาด้วยก้อนที่ท้องด้านล่างซ้ายสามารถดันกลับได้ และคลำไม่พบอัมชะในถุงทั้งสองข้างแต่คลำพบอัมชะข้างขวาที่บริเวณขาหนีบ (รูปที่ 2)

วินิจฉัยโรคเป็น Left reducible SH and bilateral undescended testes



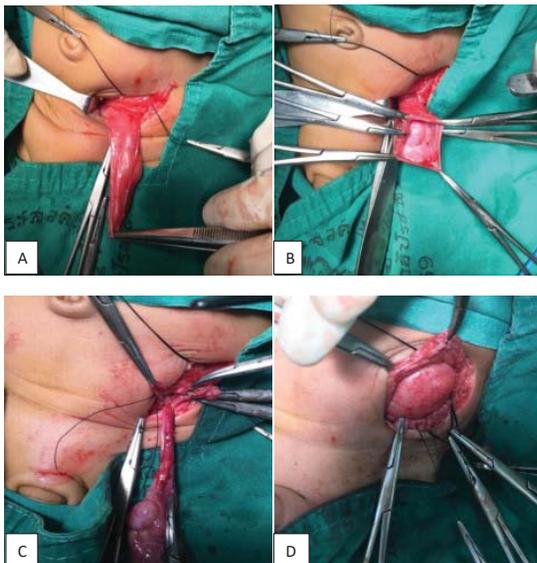
รูปที่ 2

(A) ภาพแสดง อาการของผู้ป่วยเด็กชายอายุ 2 เดือน มีก้อนที่ท้องด้านล่างซ้ายและคลำไม่พบอัมชะทั้งสองข้าง
(B) ภาพวงกลมสีแดงแสดงตำแหน่งของอัมชะข้างขวาที่คลำพบและรอยจุดประคือขอบช่องโหว่ของ Spigelian fascia.

Ultrasound พบ echogenic tissue ของลำไส้ที่ตำแหน่งช่องท้องทางด้านซ้ายโดยไม่พบอัมชะ ซึ่งอาจจะเป็นเพราะมีลมของลำไส้มาบัง ส่วนอัมชะขวาพบที่บริเวณขาหนีบขวา

การรักษาในผู้ป่วยรายนี้คือผ่าตัดเปิดแผลที่ด้านซ้ายล่างในแนวเฉียงบนตำแหน่งของช่องโหว่โดยทำเครื่องหมายไว้ก่อนที่จะดมยา หลังจากพบถุงไส้เลื่อนแล้วเปิดถุง (รูปที่ 3A) จะพบอัมชะซ้าย ท่อนำอสุจิและเส้นเลือดที่มำเลี้ยงอัมชะอยู่ในถุง Spigelian hernia (รูปที่ 3B)

หลังจากแยกอณฑะ, ท่อนำสุจิ และเส้นเลือดออกจึงทำการปิดถุงไส้เลื่อน ซึ่งระหว่างนั้นสำรวจพบว่าไม่มี inguinal canal และ gubernaculum จึงได้ทำช่องขึ้นมาใหม่ระหว่าง Inferior epigastric vessels และ pubic tubercle (รูปที่ 3C) เพื่อเป็นช่องทางนำอณฑะลงไปไว้ในถุง ทำการ mobilize และวางอณฑะซ้ายในชั้น subdartos pouch โดยในรายนี้สามารถ mobilize ได้จนไม่มีแรงดึงเลย ขนาดช่องโหว่ 4x3 cm ที่พบ ปิดด้วย polypropylene mesh (รูปที่ 3D) หลังผ่าตัดไม่พบปัญหา และสามารถกลับบ้านได้ในวันถัดมา ส่วนอณฑะไม่ลงถุงข้างขวาที่คลำได้ใน Inguinal canal ได้ปรึกษาผู้ปกครองแล้วเห็นด้วยกับการรอประมาณ 6-10 เดือนหากไม่ลงมาในถุงอณฑะจะทำการผ่าตัดในเวลาต่อมา



รูปที่ 3

- (A) รูปภาพแสดงถุงไส้เลื่อน Spigelian
- (B) รูปภาพแสดงอณฑะที่อยู่ในถุงไส้เลื่อน Spigelian
- (C) รูปภาพแสดงอณฑะซ้าย, ท่อนำสุจิและ เส้นเลือด หลัง mobilize
- (D) รูปภาพแสดงช่องโหว่ขนาด 4x3 cm ที่จะถูกปิดด้วย polypropylene mesh.

ตรวจติดตามที่ 1,2,4 และ 6 เดือน ผู้ป่วยสบายดี อณฑะซ้ายอยู่ในถุงไม่ดึงและขนาดไม่เล็กลง ส่วนข้างขวาพบว่าเคลื่อนลงมามากขึ้น (รูปที่ 4)



รูปที่ 4 : รูปภาพแสดงแผลผ่าตัด 2 สัปดาห์หลังผ่าตัด

การอภิปราย

Spigelian hernias ในเด็กพบได้น้อยกว่าพบในผู้ใหญ่ มาก และมักพบในผู้ชายมากกว่าผู้หญิง (อัตราส่วน 2:1) โดยพบข้างซ้ายมากกว่าและพบทั้งสองข้างได้ถึง 11%⁹ ในเด็กมีการรายงานกลุ่มอาการ Spigelian hernia-cryptorchidism syndrome ที่ถือว่าพบได้น้อยมากๆ เกิดจากความผิดปกติของการพัฒนาตั้งแต่เป็นตัวอ่อนโดยมีลักษณะคือมีอวัยวะหรือไขมันในช่องท้องยื่นออกมาผ่านช่องโหว่ของ Spigelian fascia จึงเรียกว่าถุงไส้เลื่อน Spigelian (Spigelian hernia), ซึ่งพบว่ามีความสัมพันธ์กับอณฑะไม่ลงถุงอาจเป็นข้างเดียวหรือทั้งสองข้างก็ได้ (มักพบอณฑะอยู่ในถุงไส้เลื่อน) รวมทั้งพบร่วมกับการไม่มี Gubernaculum และ/หรือไม่มี inguinal canal ร่วมด้วย^{7,8} ยังมีบทความที่ได้แย้งถึงสาเหตุการเกิดว่าเป็นแค่ความบังเอิญที่พบร่วมกันระหว่าง Spigelian hernia และอณฑะไม่ลงถุง หรือภาวะอณฑะไม่ลงถุงเป็นเหตุทำให้เกิด Spigelian hernia ที่เป็นมาแต่กำเนิดหรือการที่ผนังหน้าท้องมีความอ่อนแอผิดปกติก่อน แล้ว



ทำให้อัณฑะที่จะเคลื่อนลงมาปกติตกลงไปในถุงไส้เลื่อนดังกล่าว^{8,9,11} ซึ่งปัจจุบันก็ยังไม่ได้ข้อสรุปที่ชัดเจน จากบทความของ Rushfeldt และคณะรายงานว่า Spigelian hernia-cryptorchidism syndrome เริ่มมาจากการที่อัณฑะไม่เคลื่อนลงมาที่ถุงอัณฑะจึงไม่มีการสร้างและพัฒนา gubernaculum และไม่มี inguinal canal โดย Spigelian hernia-cryptorchidism syndrome จะประกอบไปด้วยความผิดปกติตั้งแต่กำเนิด 4 อย่างด้วยกันคือ ช่องโหว่ของ Spigelian fascia, ถุงไส้เลื่อนที่มีอัณฑะอยู่ภายใน, การไม่มีของ gubernaculum และไม่มี inguinal canal⁸ รายงานผู้ป่วยรายนี้สนับสนุนสมมุติฐานของ Rushfeldt และคณะ การพบผู้ป่วยเด็กที่มาด้วยก้อนไส้เลื่อนที่ท้องด้านล่าง ร่วมกับอัณฑะไม่ลงถุง กุมารศัลยแพทย์ควรนึกถึงกลุ่มอาการนี้ไว้ด้วย ซึ่งการตรวจร่างกายในผู้ป่วยกลุ่มนี้จัดว่าเป็นเครื่องมือในการวินิจฉัยหลักที่สำคัญ โดยต้องแยกโรคไส้เลื่อนบริเวณขาหนีบที่พบบ่อยในเด็กออก และคลำหาอัณฑะ ส่วนการทำ ultrasound นั้นเป็นเครื่องมือที่ช่วยในการวินิจฉัยได้โดยจะพบถุงไส้เลื่อนตำแหน่งช่องโหว่ Spigelian fascia และพบอัณฑะได้ในถุงไส้เลื่อน แม้ว่าบางครั้งจะพบว่ามีเงาของลำไส้มาดบังทำให้หาอัณฑะไม่พบเหมือนในผู้ป่วยรายนี้เมื่อวินิจฉัยโรคแล้ว การรักษาคือการผ่าตัดปิดช่องโหว่และนำอัณฑะลงไปไว้ในถุงอัณฑะ เพื่อป้องกันการเกิดไส้เลื่อนติดหรือลำไส้อุดตัน^{2,7,8} หากช่องโหว่มีขนาดใหญ่ การเย็บปิดอาจทำได้ยาก แนะนำให้ใช้ mesh ดังเช่นผู้ป่วยรายนี้ ส่วนการทำ orchiopexy เนื่องจากไม่มี inguinal canal จึงต้องทำช่องขึ้นใหม่ระหว่าง Inferior epigastric vessels และ pubic tubercle เพื่อจะได้เป็นทางนำอัณฑะลงไปไว้ในถุง ควร mobilize จน testicular vessels ไม่ตึงเพื่อวางอัณฑะในตำแหน่งปกติได้โดยไม่มีแรงดึง

เอกสารอ้างอิง

1. David WL, R. Farley. Spigelian Hernias: Repair and Outcome for 81 Patients. *World J of Surgery* , 2002; 10(26):1277–1281.
2. Skandalakis PN, Zoras O, Skandalakis JE, Mirilas P. Spigelian hernia: surgical anatomy, embryology, and technique of repair. *Am Surg*, 2006; 72:42.
3. Mustafa I, Umit NB, Burhan A. Congenital Spigelian hernia associated with undescended testis. *World J Pediatr*, 2012 ; 8 (2):185–187.
4. Ostlie DJ, Zerella JT. Undescended testicle associated with spigelian hernia. *J Pediatr Surg* ,1998 ; 33:1426–1428.
5. Brendan C. Jones, John M. Hutson. The syndrome of Spigelian hernia and cryptorchidism: A review of paediatric literature. *J Pediatr Surg* , 2015; 50(2):325–330.
6. Bilici S, Gunes M, Goksu M. Undescended testis accompanying congenital Spigelian hernia: is it a reason, a result, or a new syndrome? *European J of Pediatr Surg* ;22 (2) :157-161.
7. Raveenthiran V. Congenital Spigelian hernia with cryptorchidism: probably a new syndrome. *Hernia*. 2005 ; 9 : 378-80.
8. Rushfeldt C, Oltmanns G, Vonen B. Spigelian-cryptorchidism syndrome: a case report and discussion of the basic elements in a possibly new congenital syndrome. *Pediatr Surg Int*, 2010 ; 26: 939 - 44.
9. Al-Salem AH. Congenital spigelian hernia and cryptorchidism: cause or coincidence? *Pediatr Surg Int*, 2000 ; 16:433-6.
10. Durham MM, Ricketts RR. Congenital spigelian hernias and cryptorchidism. *J Pediatr Surg*, 2006 ; 41:1814-7.



11. Singal AK, Ravikumar VR, Kadam V, Jain V.
Undescended testis in Spigelian hernia-a
report of 2 cases and review of the literature.
Eur J Pediatr Surg, 2011; 21:194-6.