

【短 報】 産業動物

ホルスタイン種雌子牛にみられた唇顎口蓋裂の1症例

猪熊 壽¹⁾ 阿部 哲男²⁾ 堀内 雅之³⁾ 古林与志安³⁾

1) 帯広畜産大学獣医学研究部門臨床獣医学分野 (〒080-8555 帯広市稲田町西2線11)

2) 十勝NOSAI (〒089-1182 帯広市川西町基線59番地28)

3) 帯広畜産大学獣医学研究部門基礎獣医学分野 (〒080-8555 帯広市稲田町西2線11)

要 約

ホルスタイン種新生雌子牛に、鼻鏡と上顎口唇の癒合不全および重度の口蓋裂を認め、唇顎口蓋裂と診断した。硬口蓋は認められず、舌は常に露出していた。聴診により全収縮期雑音が聴取され、心臓超音波検査により心室中隔欠損、心房中隔欠損および大動脈右室起始が確認された。症例は当初自力起立可能で哺乳欲もみられたが、次第に衰弱して第6病日に死亡した。病理解剖では生前所見に加えて、軟口蓋および鼻中隔の欠損がみられた。心臓には心室中隔欠損、心房中隔欠損および両大血管右室起始が確認された。肺は胸膜や横隔膜との癒着が重度であった。本症例は重複心奇形が合併した非常にまれな牛の唇顎口蓋裂であり、誤嚥性肺炎を併発して死亡したと推測された。

キーワード：唇顎口蓋裂、両大血管右室起始、ホルスタイン種

-----北獣会誌 61, 212~215 (2017)

唇顎口蓋裂は通常的口蓋裂に加えて、顎と唇の融合不全を伴う顔面形成異常であり、牛での発生はまれな先天異常である^[1]。これまでホルスタイン種では数例の唇顎口蓋裂が報告されているが、顔面以外の先天異常の合併例はみられない^[1,2]。今回、重篤な心奇形を合併した唇顎口蓋裂のホルスタイン種子牛症例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

症例は2日齢、雌のホルスタイン種子牛で、出生時より鼻が左右に割れていることを主訴に近隣家畜診療所を受診した。身体検査によりブルドッグ様の短い鼻、鼻鏡と上顎口唇の癒合不全および重度の口蓋裂を認め、外部形態より唇顎口蓋裂と診断した(図1-3は第5病日に撮影)。症例は自力起立可能で哺乳欲があり少量の乳を摂取できたが、聴診により重篤な心雑音が聴取された。次第に衰弱したため、5日齢時に病性鑑定のため帯広畜産大学へ搬入された。搬入時、体温41.2℃、心拍数128



図1. 症例の左頭側からの顔貌。鼻鏡(白矢頭)と上唇が左右に割れており、間に下顎(矢印)が入り込み、舌(黒矢頭)が常に露出している(第5病日)。

回/分、呼吸数56回/分で、粗励な肺音および左側心尖部に最強点を持つLevine IV/IVの収縮期雑音が聴取され

連絡責任者：猪熊 壽 帯広畜産大学獣医学研究部門臨床獣医学分野
〒080-8555 帯広市稲田町西2線11
TEL/FAX 0155-49-5370 E-mail: inokuma@obihiro.ac.jp



図2. 症例の正面顔貌。鼻鏡と上唇は左右に割れ、口が完全に閉じない(第5病日)。



図3. 明瞭な口蓋裂(白矢印)が認められ、硬口蓋はみられなかった(第5病日)。白矢頭:舌

態となり死亡した。

病理学的検査所見

た。この収縮期雑音は心電心音図検査により全収縮期雑音であることが確認された(図4)。また、心臓超音波検査により、心室中隔欠損(図5・矢頭)、心房中隔欠損および大動脈右室起始(図5・矢印)が認められた。症例の口腔内には、硬口蓋は認められず、舌は常に口外に露出して先端が乾燥し一部化膿していた。血液検査では赤血球数: $6.47 \times 10^6/\mu\text{l}$ 、ヘモグロビン: 9.1 g/dl 、ヘマトクリット値: 28%、白血球数: $9,300/\mu\text{l}$ 、血小板数: $366 \times 10^3/\mu\text{l}$ であった。症例は搬入翌日には虚脱状

死亡後に行われた病理解剖では、生前所見の他、頭部には軟口蓋および鼻中隔の欠損がみられた(図6)。肺は胸膜と横隔膜の癒着が重度で、癒着部にはフィブリン沈着がみられた(図7)。心臓は全体が拡張しており(図7)、大動脈は肺動脈右方に隣接して起始し、両大血管右室起始が確認された(図8)。また直径2 cmの心室中隔欠損と直径1 cmの心房中隔欠損がみられた(図9)。

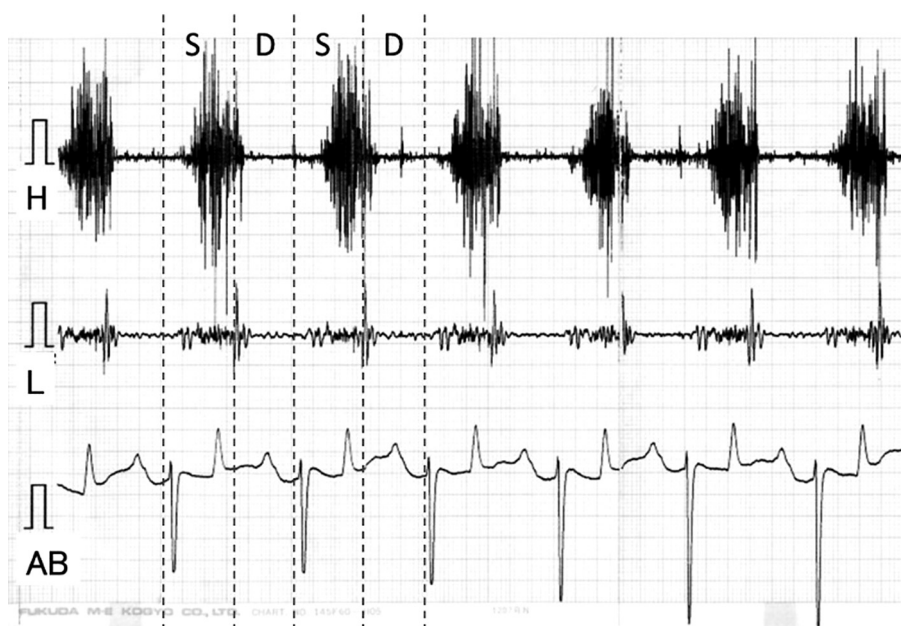


図4. 心電図(AB誘導)および左側心尖部における心音図解析において、強い全収縮期雑音が記録された。S:収縮期、D:拡張期。

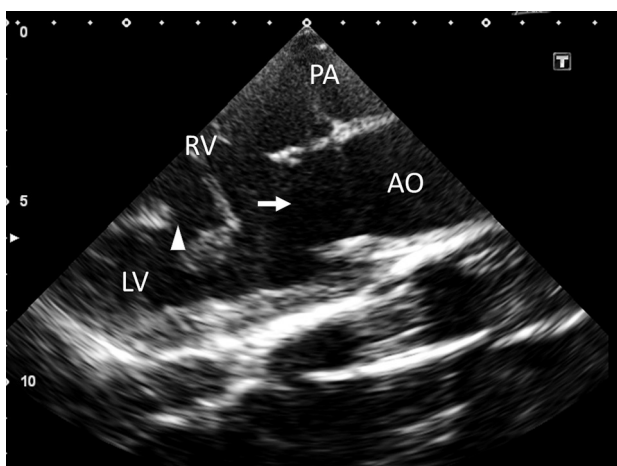


図5. 心臓超音波検査により、心室中隔欠損(矢頭)、心房中隔欠損および大動脈右室起始(矢印)が認められた。PA: 肺動脈、AO: 大動脈、RV: 右心室、LV: 左心室。



図6. 下顎を外した頭部を口腔側から観察したところ、硬口蓋のみならず、軟口蓋の欠損も認められた。左右の鼻孔にはチューブが挿入されている。

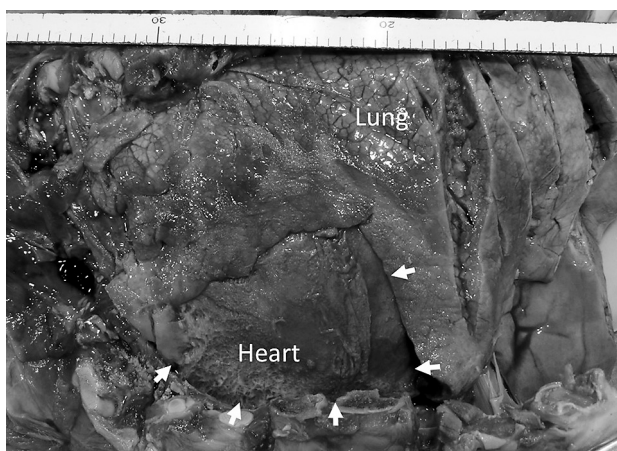


図7. 胸腔では、心嚢が拡大し(白矢印)は、胸膜および横隔膜との癒着が重度であった。

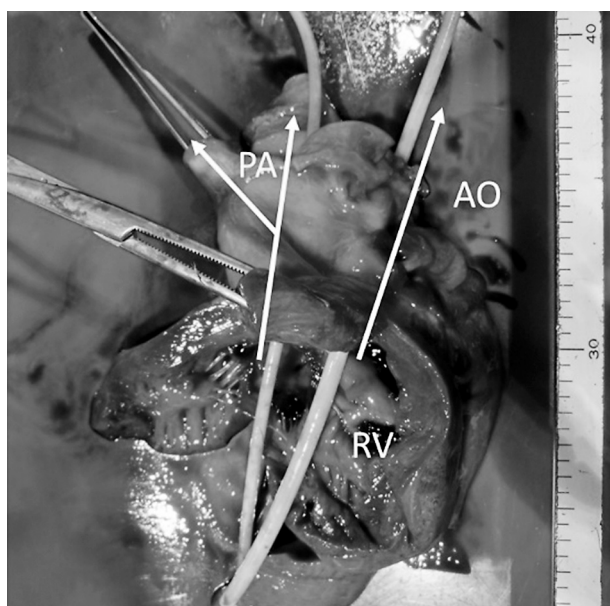


図8. 心臓を右心室(RV)で切り開き、大動脈(AO)および肺動脈(PA)にチューブを通したところ、AOはPAの右方に隣接してRVから起始しており、両大血管右室起始が確認された。

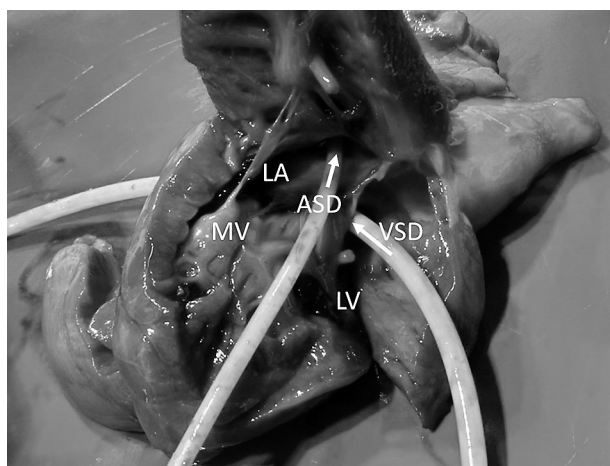


図9. 心臓を左心室(LV)から切り開き、心室中隔欠損(VSD)および心房中隔欠損(ASD)のそれぞれの孔にチューブを通したもの。LA: 左心房、MV: 僧帽弁

病原学的検査所見

本症例の末梢血を材料として、牛ウイルス性下痢ウイルス(bovine virus diarrhea virus; BVDV)に対するRT-PCRを実施したが、陰性であった。

考 察

口蓋裂は牛の頭部の異常の中で最もよくみられる形態異常であるが^[3]、口蓋裂に加えて唇と顎の癒合不全を伴う唇顎口蓋裂は非常にまれな先天異常であり、牛ではこれまで数例の報告しかみられない^[1,2]。哺乳動物では

口蓋、唇および心臓はいずれも胚発生の初期、いわゆる器官形成期に形成され、ヒトでは4～8週齢とされている^[4]。今回の牛の症例においても、他の哺乳類同様、器官形成期において何らかの異常が生じたものと思われた。牛では品種特異的に唇裂および口蓋裂が多発するため、顔面形成異常の発生には遺伝的関与があるものと考えられている^[3,5]。しかし、ホルスタイン種においては、唇裂、唇顎裂および口蓋裂の発生は散発的であり、遺伝的要因の関与は報告されていない^[3,5]。一方、環境因子としては、多くの薬物（解熱鎮痛剤、鎮静剤、抗菌薬、麻酔薬、免疫抑制剤、アルコール）、ホルモン（性ホルモン）、植物（ルピナスなど）由来の化学物質、ウイルス感染など多様な原因の関与が考えられているが^[6-10]、確定したものはない。本症例においては末梢血からBVDVは検出されず、唇顎口蓋裂の発生原因を特定することはできなかった。

本症例は出生直後には自力で起立し哺乳欲もあったが、次第に衰弱し第6病日に死亡した。病理解剖では胸膜炎を伴う重篤な肺炎が認められた。唇顎口蓋裂では哺乳時の嚥下障害および誤嚥が生じやすく、一般に予後は不良である^[1]。本症例でも誤嚥性肺炎に起因する重篤な胸膜肺炎が死因となった可能性が考えられた。さらに、本症例では心室中隔欠損、心房中隔欠損に加えて、両大血管右室起始が重複していた。両大血管右室起始では重篤な心不全症状を呈することが多く^[11,12]、本症例の場合には心奇形単独であっても、体循環に十分な動脈血を供給することができず、予後不良であったことが考えられた。これまで報告された唇顎口蓋裂の牛症例^[1,2]では顔面の形成異常以外の重篤な奇形は記載されておらず、本症例は重篤な心奇形が合併した、たいへんまれな症例であったと思われた。

引用文献

[1] Kazempoor R, Akbarinejad V, Mardjanmer SH, Shojaei M, Soroori S, Amini M: Bilateral cleft lip,

jaw, and palate in a female Holstein calf, *Comp Clin Pathol*, 21, 349-352 (2012)

[2] Moritomo Y, Tsuda T, Miyamoto H: Cranial skeletal abnormalities in anomalous calves with clefts of the faces, *J Vet Med Sci*, 61, 1147-1152 (1999)

[3] 森友靖生: 口蓋裂, カラーアトラス牛の先天異常、浜名克己監修、73-75、学窓社、東京 (2006)

[4] Moore KL, Persaud TVN: 器官形成器、ムーア人体発生学 原著第8版、瀬口春道・小林俊博訳、71-92、医歯薬出版、東京 (2011)

[5] 森友靖生: 唇裂・唇顎裂, カラーアトラス牛の先天異常、浜名克己監修、75-77、学窓社、東京 (2006)

[6] 高橋庄二郎: 口唇裂・口蓋裂の発生機序と発生要因、日口蓋誌、15、49-61 (1990)

[7] Gelberg HB: Pathologic basis of veterinary disease, McGavin MD et al eds, 4th ed, 302-303, Mosby Elsevier, St. Louis (2007)

[8] Casteel SW: Current therapy in large animal theriogenology, Youngquist RS et al eds, 420-427, Saunders, St. Louis. (2007)

[9] James WH: Are oral clefts a consequence of maternal hormone imbalance? Evidence from the sex ratios of sibs of probands, *Teratology*, 62, 342-345. (2000)

[10] 三浦茂樹: 奇形発現におけるウイルスの関与について—MMTV (mouse-mammary-tumor-virus) の糖コルチコイド誘発口蓋裂に対する関与、日口蓋誌、14、177-190 (1989)

[11] 村上隆之、萩尾光美、那須哲夫、斎藤勇夫: ウシの両大血管右室起始症について、動物の循環器、18、58-64 (1985)

[12] 齋藤 亨、丸山亮介、長濱光朗、古林与志安、松本高太郎、猪熊 壽: ホルスタイン種子牛にみられた大動脈弁下型両大血管右室起始症の1症例、北獣会誌、57、122-125 (2013)