乳児 urogenital sinus cyst の 1 例

大分医科大学泌尿器科教室 (主任: 緒方二郎)

溝口 裕昭 奈須 伸吉 福永 良和
野村 芳雄 緒方 二郎

UROGENITAL SINUS CYST IN A CHILD A Case Report

Hiroaki Mizoguchi, Nobuyoshi Nasu, Yoshikazu Fukunaga, Yoshio Nomura and Jiro Ogata
Department of Urology, Oita Medical University
(Director: Prof. J. Ogata)

A rare case of urogenital sinus cyst in a child is reported.

A 10-month-old boy was referred to our hospital under the diagnosis of acute epididymitis. IVP showed left hydronephrosis and round filling defect in the bladder. Ultrasonography and CT scan demonstrated a retrovesical cystic lesion. Right vesiculography under general anesthesia revealed a midline cystic lesion. Fenestration between the prostatic urethra and cystic lesion was performed by TUR-velmontanum. However, that cystic lesion did not disappeared.

Our case seems to be the youngest case of urogenital sinus cyst reported in the Japanese literature.

Key words: urogenital sinus cyst, acute epididymitis

要旨: 症例は10カ月, 男児。主訴, 陰嚢内容腫脹。1990年5月, 39℃の発熱と共に陰嚢内容の腫脹を認め, 急性精巣上体炎の診断で当科に紹介された。IVPで左腎盂尿管移行部狭窄による中等度の水腎症, 膀胱部の球状の陰影欠損を認める。CT, 超音波検査で膀胱後部に嚢胞状腫瘤を認める。用手圧迫による膀胱尿道造影では膀胱三角部に陰影欠損を認めるほかは尿道弁, 尿道狭窄, VUR等は認めない。右側からのみの精嚢造影で膀胱正中部に嚢状の造影剤の貯留を認めた。尿道, 膀胱への造影剤の流出はみられなかったが, 両側の精嚢が充影されたことから, 単一の嚢胞に両側の精嚢が開口した Urogenital sinus cyst と診断した。TUR-vermontanum による開窓術を行った。嚢胞状腫瘤は縮小したものの消失しなかった。現在, 排尿状態, 尿所見に異常なく, 精巣上体炎の再発もみられないことから, 外来にて経過観察中である。

本症例は本邦8例目で, しかも乳児で発見されたきわめて希な症例である。

キーワード: Urogenital sinus cyst, 急性精巣上体炎

緒 言

精管末端部領域に見られる嚢状拡張性病変は希な疾患で, 主に精嚢造影の所見からさまざまな分類がなされている。今回われわれは急性精巣上体炎で発見された乳児 urogenital sinus cyst の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例: 10カ月, 男児。

初診: 1990年6月7日。

主訴: 陰嚢内容腫脹。

家族歴, 既往歴: 特記することなし。

現病歴: 1990年5月11日, 39℃の発熱と共に陰嚢内容の腫脹を認め, 近医泌尿器科受診, 急性精巣上体炎および左水腎症の診断にて当科を紹介された。外来にて経過観察中も同様の症状を繰り返すため, 精査目的にて入院させた。

入院時現症: 身長73cm, 体重9.1kgで栄養良好。体温36.4℃, 血圧105/50mmHg, 脈拍114/分, 整。胸腹部に異常所見なし。外陰部所見両側精巣上体の腫脹を認める。

入院時検査成績: 血液像: RBC 464万/mm³, Hg 10.3g/dl, Ht 32.6%, WBC 14,360/mm³, PLT 61.4

Fig. 1 IVP showed left hydronephrosis and round filling defect in the bladder.

Fig. 2 CT scan showed multiple retrovesical cysts (▼).

万/mm³, 血液生化学; TP 5.3g/dl, ALB 3.7g/dl, TBil 0.2mg/dl, GOT 28IU/L, GPT 10IU/L, ALP 536IU/L, BUN 14mg/dl, Cr 0.5mg/dl, IP 6.9mg/dl, Ca 9.3mg/dl, Na 136mEq/L, K 4.3mEq/L, Cl 99mEq/L, CRP 0.73mg/dl, 尿所見; 黄色透明, 蛋白(-), 糖(-), 尿沈査異常なし。

IVP: 左腎盂尿管移行部狭窄による中等度の水腎症を認める。膀胱部に大きな球状の陰影欠損を認める (Fig. 1)。

骨盤部 CT 検査: 膀胱後部に多房性嚢胞状腫瘍を認める (Fig. 2)。

経腹的膀胱超音波検査でも膀胱後部に嚢胞状腫瘍を認めたため, 1990年8月27日, 全身麻酔下にて下記検査を施行した。

1) 膀胱尿道造影: 用手圧迫による expression cystography では膀胱三角部に陰影欠損を認めるほかは尿道弁, 尿道狭窄, VUR 等は認めなかった (Fig. 3)。

Fig. 3 Expression cystography showed neither urethral valve nor VUR.

Fig. 4 Right vesiculography revealed a midline cystic lesion (C) involving both seminal vesicles (▼).

2) 膀胱尿道鏡: 膀胱三角部の膨隆を認めるが, 両側尿管口および膀胱粘膜に異常は認めない。

3) 精嚢造影: 右側からのみ造影を行った。膀胱部正中に嚢状の造影剤の貯留を認め, 両側の精嚢が充影された。尿道および膀胱への造影剤の流出はみられなかった (Fig. 4)。

両側の精嚢が正中の嚢胞病変と交通していることから urogenital sinus cyst と診断し, 1990年9月17日, 全身麻酔下に精阜の一部を含めて前立腺部尿道を経尿道的に切除し嚢胞状腫瘍の尿道への開窓術を行った。術後は一過性の発熱を認めたほかは順調で, 術後10日目の CT で嚢胞状腫瘍は縮小したので退院させた。

臨床経過: 骨盤部 CT, 経腹的膀胱超音波検査にて定期的に外来観察していたが, 術後2年を経過しても膀胱後部の嚢胞状腫瘍が消失しないため, 検査のため1992年9月22日再入院させた。経腹的膀胱超音波

Fig. 5 Transabdominal ultrasonography showed retrovesical cysts (A: transverse section, B: longitudinal section).

Fig. 6 Endoscopic view of dilated portion of urogenital sinus cyst (A). Endothelial findings of the cyst was lined by transitional-like epithelium (B).

検査では膀胱後部に2.7×1.5×2.4cmの嚢胞状腫瘍を認めた(Fig. 5)。IVP所見は前回と変わらないが、膀胱造影で膀胱後部の嚢胞状腫瘍は造影されており、腫瘍と尿道との交通が確認された。全身麻酔下に行なった膀胱尿道鏡では腫瘍は前立腺部尿道に開口しており、腫瘍内に内視鏡を挿入して観察すると、内腔は血

管に乏しい粘膜に被われ、多房性に拡張していた(Fig. 6A)。粘膜を一部生検したところ移行上皮類似の上皮細胞に覆われていた(Fig. 6B)。現在、排尿状態および尿所見に異常なく、精巣上体炎の再発を示唆する所見もないことから、外来にて経過観察中である。

考 察

精嚢領域の嚢胞性病変には前立腺嚢胞、Müller管由来のMüller管嚢胞、前立腺小室、Wolff管由来の精嚢嚢胞などが含まれる。精嚢嚢胞に関しては精嚢嚢腫、精嚢憩室症¹⁾、精管末端部異常拡張症²⁾、射精管拡張、精管膨大部拡張³⁾、精嚢嚢状拡張症⁴⁾などさまざまな名称が用いられている。

松岡ら¹⁾はtrue cystは精路と交通がなく精嚢造影で描出されないものとし、精路との交通を有し精管末端部の閉塞により精嚢全体が嚢状に拡張したものはpsoudocyst、尿路への通過障害のため嚢状に拡張したものはdiverticulosisと呼ぶべきとしている。岩崎ら⁴⁾は憩室様構造を認めないほど拡張した精嚢の拡張病変に対しては精嚢嚢状拡張症と呼称すべきとしている。精嚢嚢状拡張症は両側性で、尿道との交通があり、嚢胞腎の合併頻度が高いことから先天性疾患とし、後天的閉塞による射精管閉塞とは区別している。また、佐藤ら³⁾は臨床的に分かりやすい分類として精管末端部領域の嚢状拡張性病変を精嚢自体と精管自体とに分け、前者を精嚢嚢胞、精嚢憩室症、後者を精管膨大部拡張、射精管拡張に区別すべきとしている。

これらの嚢胞性病変はその解剖学的位置からおおよそ次のような臨床的鑑別が可能という。Shabsighら⁵⁾によれば病変が側方に位置する場合は精嚢嚢胞または前立腺嚢胞が考えられ、この鑑別には経直腸の超音波検査が有用としている。さらに病変が正中にある場合には嚢胞液を穿刺吸引し、精子がなければMüller管嚢胞、精子があれば射精管憩室症と分類している。一般にMüller管嚢胞は内容液に精子を認めず、精嚢造影で造影されない特徴があるとしている⁴⁾。

さて本症例は解剖学的位置としては正中にあり、右側からの精嚢造影で嚢胞は造影され、しかも尿道への造影剤の流出がみられなかったため、先天性の射精管閉塞による射精管嚢状拡張と考えた。しかし、右からのみの精嚢造影で両側の精嚢が造影されており、単一の嚢胞内に両側の精嚢が開口していることが推測された。

このような病変は本邦では石神ら⁶⁾が1960年、『単一化せる射精管の拡張』として3例を報告、その後Ta-

katara ら⁷⁾が1例, 佐藤ら³⁾が射精管拡張症4例のうちの3例が単一化した射精管の拡張と思われると報告しているに過ぎない。

Elder ら⁸⁾は両側の射精管および精嚢と交通し正中に位置する嚢胞の1例を報告し, このような retroprostatic/retrovesical cyst は urogenital sinus cyst として分類することを提唱している。さらに Müller 管の尾側端が正中で融合し urogenital sinus に接する部位は両側の Wolff 管開口部に囲まれた部位であることから, Müller 管の融合部の異常により生じた正中の嚢胞が射精管あるいは精嚢と交通したとしてもおかしくないと述べている。Müller 管の発達に Wolff 管の存在なしには起こり得ないものであること, 胎生8週頃の Müller 管の尾側端は Wolff 管と密接に連結し, 両者の上皮を分ける基底膜もないこと⁹⁾などから考えれば, urogenital sinus cyst は Wolff 管が urogenital sinus に開口する際に生じた異常が, Müller 管の残遺に何らかの変化を引き起こし, 発生するものではないかと思われる。

urogenital sinus cyst の症例を文献的に検討してみると, 精嚢嚢胞がしばしば同側の腎の形成不全をとまうのに比べ上部尿路の奇形の合併がないか, 問題にされていない。King ら¹⁰⁾によれば91例の精嚢嚢胞のうち実に80%に同側の腎の形成不全, 8%に重複尿管を認めたという。これは胎生4週目に Wolff 管から尿管芽が発生するときに通常よりも頭側に発生すればするほど, 尿管が尿道, 精嚢などに異所開口してしまうこと, このような不完全な尿管は nephrogenic blastema の発達を刺激できないために腎の形成不全が生じてしまうこと, これに Wolff 管と urogenital sinus との交通が欠如すると分泌物のために精嚢嚢胞が発生するからだと説明されている¹⁰⁾¹¹⁾。

これに対して urogenital sinus cyst では Wolff 管から尿管がすでに独立し, それぞれが urogenital sinus に別々の開口部を持った後で, Wolff 管の尾側端から精嚢が発生する胎生13週目以降に射精管に生じた Müller 管を含めた urogenital sinus への開口異常が原因であろうと考える。本例では左水腎症は認められたが, 腎形成不全はなく, さらに嚢胞を覆う上皮が円柱上皮ではなく, 移行上皮に類似した上皮であったことも, これを裏付ける。

治療は以前は嚢胞切除術がなされていたが, 最近は経尿道的切開術による開窓術の報告が多い。ことに射精管拡張症においては TUR-verumontanum が盛ん

に行われている³⁾。本症例は10カ月という乳児であり, 両側の精嚢と嚢胞性病変が関連していたため, 根治的摘出は不妊症が必発と考え TUR-verumontanum を施行した。治療2年後の現在も嚢胞性病変は消失していないが, 以後精巣上体炎の再発もないため外来にて経過観察することにする。

結 語

急性精巣上体炎で発見された10カ月の男児 urogenital sinus cyst の1例を報告した。

本論文の要旨は第2回日本小児泌尿器科学会において発表した。

文 献

- 1) 松岡 啓, 中川克之, 野田進士: 精嚢腺嚢状拡張について, 西泌尿, 39, 713—724, 1977.
- 2) 磯松幸成, 岡野 学, 秋野裕信, 村中幸二, 蟹本雄右, 清水保夫, 河田幸道: 経尿道的手術により妊娠が成立した精管末端異常拡張症性無精子症の1例. 泌尿紀要, 32, 891—895, 1986.
- 3) 佐藤和宏, 折笠精一, 相沢正孝, 前原郁夫, 佐藤滋彰: 不妊を主訴とし精管末端部領域の形態異常を呈した6症例について, 泌尿器外科, 2, 787—793, 1989.
- 4) 岩崎 皓, 広川 信, 穂坂正彦, 岩本晃明, 木下裕三, 松下和彦: 精嚢嚢状拡張症およびその分類について, 日泌尿会誌, 79, 1385—1392, 1988.
- 5) Shabsigh, R., Lerner, S., Fishman, I.J. and Kadmon, D.: The role of transrectal ultrasonography in the diagnosis and management of prostatic and seminal vesicle cysts. J. Urol., 141, 1206—1209, 1989.
- 6) 石神襄次, 加古 賢, 矢田文平, 吉田秀政, 中野順道: 精嚢腺並びに精管末端部の異常拡張症に就て. 泌尿紀要, 6, 792—804, 1960.
- 7) Takatera, H., Sugao, H. and Sakurai, T.: Ejaculatory duct cyst: The case for effective use of transrectal longitudinal ultrasonography. J. Urol., 137, 1241—1242, 1987.
- 8) Elder, J.S. and Mostwin, J.L.: Cyst of the ejaculatory duct/urogenital sinus. J. Urol., 132, 768—771, 1984.
- 9) Gruenwald, P.: The relation of the growing müllerian duct to the wolffian duct and its importance for the genesis of malformation. Anat. Rec., 81, 1—19, 1941.
- 10) King, B.F., Hattery, R.R., Lieber, M.M., Berquist, T.H., Williamson, B. Jr. and Hartman, G. W.: Congenital cystic disease of the seminal vesicle. Radiology, 178, 207—211, 1991.
- 11) Zaontz, M.R. and Kass, E.J.: Ectopic ureter opening into seminal vesicle cyst associated with ipsilateral renal agenesis. Urology, 29, 523—525, 1987.

(1993年7月15日受付, 10月4日受理)