原 著

尿生殖洞異常女児に対するLaparoscopic hysterectomy (LH) の経験

京都府立医科大学附属病院 産婦人科¹⁾、小児外科²⁾吉岡 崇¹⁾、大久保智治¹⁾、山口剛史¹⁾、木村 修²⁾、北脇 城¹⁾Laparoscopic Hysterectomy for Pyometra and Pyocolpos
Caused by Obstruction in the Vagina of a 13-Year-Old Girl
with Urogenital Sinus AnomalyTakashi Yoshioka¹⁾, Tomoharu Okubo¹⁾, Takeshi Yamaguchi¹⁾, Osamu Kimura²⁾, Jo Kitawaki¹⁾Dep. of OB/GYN¹⁾, Division of Surgery, Children's Research Hospital²⁾, Kyoto Prefectural University of Medicine

Objective: We report a relatively rare case of laparoscopic hysterectomy (LH) performed in a young girl for urogenital sinus anomaly.

Patient: We scheduled hysterectomy for a 13-year-old girl who had a history of recurrent colpititis and cystitis with pyometra and pyocolpos caused by vaginal obstruction. At the age of 2 years, she had undergone a radical operation of urogenital sinus anomaly. At the age of 12 years and 10 months, she had undergone re-vaginoplasty. Even after the surgery, she had recurrent episodes of colpititis and cystitis with pyometra and pyocolpos caused by menstruation and vaginal re-obstruction. Since we preferred to reduce the risks of repeated infections and interventions rather than conserve the uterus, we performed hysterectomy. We decided to perform laparoscopic hysterectomy.

Conclusion: This case has shown that LH is more suitable than one-sided approaches such as total abdominal hysterectomy and total vaginal hysterectomy for patients who have obstructions in their urogenital tracts.

Key Words: urogenital sinus anomaly, pyometra and pyocolpos, laparoscopic hysterectomy (LH)

緒 言

われわれは尿生殖洞異常を伴う13歳女児に対して、Laparoscopic hysterectomy (LH) を行ったのでこれを報告したい。尿生殖洞は両性における泌尿生殖器の発生段階での一形態である。在胎9週時におけるミューラー管の発育停止、尿生殖洞との癒合によって、泌尿腔合流あるいは共通尿生殖洞となる。腔分化の停止の時期によって様々な程度の尿生殖洞遺残が臨床的に認められる^{1,2)}。

腹腔鏡下手術は外科系各科において低侵襲性手術として実施されており、産婦人科領域においても着実に適応拡大している手術である。内視鏡を通しての腹腔内操作と、直接的経腔操作の両方のアプローチを持ち、低侵襲性ととともに症例によってはこの特性を生かすこともできる。LHとは腹腔鏡下で子宮上部靱帯の処理だけにとどまらず子宮

動脈の処理まで行うが、同時に腔からの操作を伴う。

女児における子宮摘出例の報告は希少である。本症例では、30月齢時に尿道腔分離術を受けた。12歳と10ヶ月時、繰り返す発熱と帯下を認めたため、腔口拡大術を受けるも、短期間で再狭窄し、以前と同様の症状が持続した。長期にわたる感染、炎症のため腔の維持が困難であること、精神発達遅滞のため生殖機能温存よりも根治術としての子宮摘出術が好ましいと考え、LHを行い奏功したので報告する。

症 例

【患者】13歳4ヶ月女児。身長145cm、体重65kg、BMI 30.9kg/m²。

【既往歴】在胎38週、経腔分娩にて出生、出生体重2978g、新生児仮死などは認めていなが、軽度

図1 30ヶ月時の膣形成術（flap vaginoplasty）（左：術前、右：術後）

共通尿生殖洞を尿道と膣に分離する手術が行われた。

の精神発達遅滞を認めた。

7月齢時、子宮留水腫に対して超音波ガイド下に子宮ドレナージ術が施行され、同時に尿生殖洞異常の診断を受けた。

11月齢時、四肢多指症手術施行。

30月齢時、尿生殖洞異常に対して尿道膣分離術が施行された^{3,4)}（図1）。以降、1～2ヶ月に一度膣ブジーが行われた。

【家族歴】祖父に糖尿病、祖母に心臓手術の既往あり。

【現病歴】初潮が12歳3ヶ月に発来。12歳8ヶ月時に反復する発熱、帯下を認めたため、当院小児科受診。超音波断層法、MRI（図2）で径7cmの嚢胞性病変を確認した。膣の閉鎖を認めたため、

膣閉鎖による経血の子宮内、膣内貯留、子宮膣留血腫と診断した。手術目的入院。超音波下に会陰部より拡張した膣を認めた。穿刺により内容物は血液の貯留であることを確認。ガイドワイヤーを膣内に挿入し、ガイドワイヤー沿いに切開を加え膣に到達。膣粘膜と外陰部皮膚を縫合した。退院以降も定期で膣ブジーを行うも、膣口切開部は早期に狭窄を来とし、子宮膣留血腫を再形成した。以前と同様に帯下の増量、発熱、下腹部痛を認め、子宮膣留膿腫にまで発展したため治療法を再検討することとした。

臨床経過・手術所見

当科初診時、膣再閉鎖による子宮膣留膿腫と診

図2 12歳8ヶ月時の骨盤MRI像（T2強調画像）

子宮(⇨)および膣腔(⇩)に液体貯留像が認められる。また、膀胱は頭尾側に非常に長くなっている(⇩)。

断。経過とともに膣ブジーも困難となった。骨盤内感染を繰り返し、尿路感染症も合併するようになり、症状も徐々に増悪傾向にあったため早期治療を検討した。膣再形成術、偽閉経療法を考慮したが、前者は前2回の治療歴の失敗から、後者は姑息療法であることから断念した。文献的に同様な症例に対して子宮摘出術の報告があり⁵⁾、根治療法として子宮を摘出することとした。子宮摘出方法は、泌尿生殖器系に他に異常の可能性があり⁶⁾、また子宮膣移行部の状態が正確に確認できず膣自体への操作を加える必要があったため、できる限り腹腔側から処置を行い、膣側からの処置も伴うLHを施行することとした。膣に関しては術中の膣観察により処置方法を決定することとした。

全身麻酔下に患児を碎石位とし、膣を観察。膣口はほぼ完全に閉鎖していた。膣ブジーにより大量の膿排出を認めた。膣口をさらに広げるために会陰切開を加え、さらに超音波ガイド下に手動的

に膣内を拡張すると、隔壁で分離された膣腔からさらに大量の膿排出を認めた。膣内を観察すると子宮口らしき小口を認め、子宮膣部は陥没し、膣との境界は不明瞭であった。膣壁は慢性的感染・炎症のため肥厚、硬化、不整で、平滑な正常粘膜部はほとんど認められなかった。同部より採取した膿の細菌培養からGardnerella vaginalisおよび膣常在菌を認めた。

腹腔鏡操作に移り骨盤内を観察(図3)。子宮、両側付属器は正常であり、過去の手術による子宮周囲の癒着はごくわずかに認めるのみであった。拡張気味の膀胱は解剖学的位置に変異はなく、後腹膜を切開し両側の尿管の走行を確認したところ、明らかな変異を認めなかった。型のごとく両側子宮上部靱帯を超音波メスを用いて凝固、切断。膀胱子宮窩腹膜を切開し、膀胱を子宮頸部から下方へ剥離した。前方より子宮広間膜を切開し、右尿管の走行を確認後、右子宮動脈を同定し、周囲組

図3 腹腔鏡術中所見

左上：腹腔内の観察所見。左卵巢周囲に軽度の癒着(⇐)を認めた。

右上：腹腔鏡での骨盤内の処理を終え、子宮を遊離した。

左下：腹腔内から補助しつつ、経膣的に後膣円蓋(㊦)を解放しているところ。

右下：子宮摘出後。膣は粘膜部(⇒)がごくわずかであり、大部分は慢性的炎症により肥厚しており、組織は脆弱であった。

織を十分に剥離したのち、3か所クリップ後、超音波メスで末梢側クリップ間を切断した。左方も同様の処置を施した。仙骨子宮靱帯を凝固切断。腔方向からの操作で前後腔円蓋部を押し上げて、腹腔鏡下に確認しながら腹腔側腔側両方から前後腔円蓋に鉗子を貫通させた。両側の子宮頸部支持靱帯は腔方向から狭鉗、切断結紮し、子宮を摘出した。腔断端部は横方向に結紮閉鎖した。

腔は汚染され、正常粘膜部はほとんどないため、腔温存することは困難であり、また、腔形成を行うことにより再感染の可能性が高いと判断し、限局した粘膜及び炎症性に肥厚した腔壁を取り除いた後、十分に洗浄後、子宮切除断端部から処女膜の位置まで腔閉鎖を行った。腹腔鏡下に骨盤内を確認し、腔断端部を腹腔内より吸収糸を用いて連続縫合で補強した。最後に腹腔内を十分に洗浄し、

ドレーンの留置なく腹壁創部を縫合し、手術を終了した。手術時間は5時間36分、術中出血量は125gであった。手術時間の内訳は、腔ブジーに約1時間、再ドレープ、腹腔鏡操作に約1時間30分、腔式操作で子宮摘出するまでに約1時間30分、腔粘膜切除、腔洗浄、腔閉鎖に約1時間、最後の腹腔鏡操作に約30分要した。術後経過は著変なかったが、当該児は精神発達遅滞を伴い、再感染の可能性が高く、非定形的手術を行ったため安静期間を長めにし、術後16日目の退院とした。

病理組織所見は子宮は正常。摘出した腔壁は平滑筋組織を主体とした結合組織であり、上皮成分は認めないが、上皮下組織には好酸球を混じたりリンパ球・形質細胞浸潤が中等度に認められた。腔と子宮頸部との境界は不明瞭で、悪性を含めて腫瘍性所見は認められなかった。

図4 子宮全摘術5ヶ月後の骨盤CT像

閉鎖した腔内に径約2cmの膿瘍形成を認めた。

図5 治療後の骨盤CT像

CZOP 2g/dayを8日間投与後骨盤内膿瘍の消失を認めた。

5ヶ月目に患児は腹痛と発熱、膣からの分泌物を認めたため入院管理とした。骨盤CT(図4)で閉鎖した膣内に膿瘍形成を認めた。保存的に抗生物質(CZOP 2g/日 8日間)投与を行ったところ、1週間で順調に解熱し、膿瘍も消失した(図5)。その後、定期的に観察しており、現在に至るまで3年以上経過するが再発はみられない。

考 察

今回我々は先天性の泌尿生殖器異常を合併し、小児期に子宮腔ドレナージ術、尿道腔分離術、12歳3カ月の初潮確認後、子宮腔留血腫から膣ブジーを繰り返すも子宮腔留膿腫に発展し、治療に抵抗し感染を繰り返す症例を経験した。経過から治療方法の選択に苦慮したが、これまでの経過や膣の状態を考え子宮摘出することに決断した。両親を中心として患児の病状、治療法を十分に理解したことを確認したうえで同意を確認した。

子宮の摘出方法であるが、今回のケースでは低侵襲性であること、膣からの操作が必須であるが、極力膣操作を限定したものにするということを考慮して、腹腔鏡下膣式子宮全摘術(Laparoscopic hysterectomy: LH)を選択した。腹腔鏡下の観察で患児の泌尿生殖器を中心とする骨盤内解剖所見は正常であった。子宮上部靱帯から子宮動脈までの腹腔鏡下の手術手技に関しても型通り行うことができた。子宮頸部は正常であったが、子宮腔部、膣門蓋、膣壁は慢性の炎症性に変化し、表面粘膜はほぼ欠失しており、膣入口部は狭小であったため子宮頸部支持靱帯の切断処置および膣門蓋部の切開位置の決定は骨盤側および膣側両方から確認しなければならなかった。膣の温存に関しても膣の状態から、自然狭窄や再膿瘍形成の可能性が高く、不可能と判断したため閉鎖術を行った。術後、再膿瘍形成を合併したが、保存的治療で早期に軽快し、その後3年以降再発していないことから判断して、有効な治療法を選択したと考える。

小児の子宮摘出に関する報告であるが、多くは悪性腫瘍関連⁷⁾であり、今回の症例に類似した月経血排出障害に対するものが散見される⁵⁾。子宮留膿腫より敗血症ショックに陥った例も報告されており⁸⁾、卵巢機能温存が優先と考えた場合、月経血の排出障害に対する治療法は子宮摘出でやむを得ないのであろう。

結 語

患児の泌尿生殖器の状態から、子宮摘出術、膣閉鎖術を行った。子宮全摘術の方法はLHで行い、奏功したと判断している。子宮摘出が最も妥当な治療法であると判断したが、患児の将来的な性生活、生殖能を考えると、他のよりよい治療法を試行、試案することも肝要であろう。今後の新たな治療法に期待したい。

なお、本論文の要旨は第16回国際婦人科内視鏡学会学術集会および第48回日本産科婦人科内視鏡学会学術集会において発表した。

文 献

- 1) O'Neill, et al.: Abnormalities of Female Genital Tract in Pediatric Surgery 5th ed, 1998: 1826-1828, Mosby-Year Book, New York.
- 2) 和氣功治、他: 腎、尿管、膀胱の発生. 画像診断、2004; 24(7): 810-821.
- 3) 里吉清文、他: 尿生殖洞遺残に対してflap vaginoplastyを施行した副腎性器症候群の1例. 泌尿器外科、2008; 21(1): 112.
- 4) Takeya K, et al.: Successful bladder management for a pure urogenital sinus anomaly. Int J Urology 2004; 11(5): 340-342.
- 5) Rana Ashma, et al.: Hysterectomy for hematometra in a 15-year-old mentally handicapped girl with congenital cervicovaginal agenesis and concomitant ovarian adenoma. J Obstet Gynaecol Res, 2008; 34: 105-107.
- 6) Nasu K, et al.: Absence of Vagina and Hypoplasia of the Urethra and Ectopia of the Ureter. J Obstet Gynaecol Res, 1996; 22(5): 451-454.
- 7) 滝沢祥子、他: 初発時stage I で再発をきたした卵巣若年性顆粒膜細胞腫の1例、小児がん、2008; 45(1): 41-45.
- 8) 今井幸、宮崎亮一郎: 子宮留膿腫より敗血症ショックをおこした1例、日本産科婦人科学会東京地方部会会誌、2007; 56(1): 102-105.