症例報告

腹腔鏡補助下造陰術を施行した機能性子宮を有する
子宮頸部低形成・陰欠損症の1例産業医科大学 産科婦人科¹⁾、産業保健学部広域看護学²⁾
萩本真理奈¹⁾、栗田智子¹⁾、柴原真美¹⁾、遠山篤史¹⁾、
植田多恵子¹⁾、鏡 誠治¹⁾、松浦祐介²⁾、吉野 潔¹⁾Laparoscopically assisted utero-vaginal anastomosis in a patient with
uterine cervix atresia and vaginal aplasia: A case reportMarina Hagimoto¹⁾, Tomoko Kurita¹⁾, Mami Shibahara¹⁾, Atsushi Tohyama¹⁾,
Taeko Ueda¹⁾, Seiji Kagami¹⁾, Yusuke Matuura²⁾, Kiyoshi Yoshino¹⁾Department of Obstetrics and Gynecology¹⁾,Nursing of human broad development, University of Occupational and Environmental Health, Japan²⁾

Abstract

Uterine cervix atresia and vaginal aplasia in a patient with functional endometrium is a rare müllerian anomaly; however, definitive surgical treatment for this condition remains unknown. A 20-year-old woman with a several-month history of recurrent lumbago was referred to our hospital with vaginal closing. Magnetic resonance imaging revealed hematometra, and we suspected cervical atresia and vaginal aplasia. We made an incision from the vaginal aspect to create a tunnel between the bladder and the rectum by blunt dissection. Exploratory laparoscopy revealed a normal-appearing uterine corpus. We approached the endometrial cavity through a series of transverse sections on the inferior aspect of the uterine body. The edges of the uterine cavity were anastomosed to the edges of the neovagina. At her 6-month follow-up, she reported that her menses were regular, and lumbago and severe dysmenorrhea had resolved.

Key words: Cervicovaginal Atresia, Utero-Vaginal anastomosis, laparoscopic surgery

【緒言】

先天性陰欠損は比較的稀な疾患であり、4000～5000人に1人の割合で生ずるとされる。そのほとんどは、正常な卵巣を持ちながら、子宮は癒痕程度であるか或いは欠損し、腎尿路系の奇形をしばしば合併するMayer-Rokitansky-Kustner (MRK) 症候群である。先天性陰欠損症のうち機能性子宮を持つ場合は、さらに頻度が低く疾患全体の約5%程度¹⁾とされている。

機能性子宮を持つ陰欠損症では、多くが思春期に原発性無月経とモリミナ様症状で診断される。治療介入により造陰術を行い、性交渉や妊娠を可能とすることは、治療意義が大きいと考えられる。従来は開腹で子宮全摘術および腸管や遊離皮弁な

どの多臓器を利用した造陰術が行われてきたが、若年患者の多い本疾患に対し、腹腔鏡補助下での手術は低侵襲で整容性も良く、有用であると考えられる。

今回我々は、機能性子宮を有する子宮頸部低形成・陰欠損症の1例に対して、腹腔鏡補助下に子宮を温存し、造陰術（人工真皮を用いたMcIndoe法改良術式）を施行した症例について、文献的考察を加えて報告する。

患者及び家族から手術同意書とともに学会発表・論文報告に対する承諾を文書で頂いた。

【症例】

症例：20歳、未婚 0妊0産
主訴：腰痛

月経歴：初潮発来なし

既往歴：心室中隔欠損症（自然閉鎖）、自閉症

現病歴：数カ月間に及ぶ腰痛のため前医を受診した。外陰部の診察で膣口は閉鎖し、経腹エコーで子宮留血腫の所見を認めたため当院紹介となった。

初診時現症：

身長：168cm、体重：59.9kg、BMI：21.1

乳房発育・恥毛発育：Tanner分類Ⅳ

外陰部：正常女性型

膣口：5mm程度陥凹し閉鎖（図1）

検査所見：

ホルモン検査：E2：23.7pg/ml、FSH：3.4mIU/ml、LH：5.2mIU/ml

血算および生化学的検査：異常なし

経膣超音波断層法検査（膣入口部より）：子宮内に血腫あり、右卵巣27mm、左卵巣18mm

DIP検査：両側腎・尿路系異常なし

骨盤部MRI T2強調画像：子宮腔内に血液の貯留あり。子宮頸部不明瞭。腔腔同定できず（図2）。臨床経過：MRI所見より機能性子宮を有する膣欠損、子宮頸部低形成と診断した。当初自閉症や外科的治療に抵抗があり保存的治療を希望され、GnRH agonistを6回投与後にDienogestを内服した。しかし、再度子宮留血腫を繰り返し形成したため、本人・父親が手術療法を希望した。術式として、子宮全摘術と造膣術の選択肢を提示したところ、月経排出路の確保及び子宮温存を希望され、腹腔鏡補助下造膣術の方針となった。

手術時所見：全身麻酔下に腹腔鏡補助下造膣術を施行した。手術のシェーマを図3に示す。臍部に12mmカメラトロッカー、左右下腹部・下腹部正

図1：術前の外性器及び膣口
膣は5mm程度陥凹し、閉鎖している。

中に5mmトロッカーを挿入した。腹腔鏡下に腹腔内を観察すると、膀胱子宮窩、ダグラス窩を中心に血液貯留が認められた。（図4a）ダグラス窩は炎症性の癒着が認められ、両側付属器は正常外観、子宮体部は鶏卵大で挙上は容易に可能であった。

次に、経膣的な操作を開始した。膣盲端にメスで横小切開を入れクスコを用いて鈍的に膣を掘り進めた。尿道にはゾンデ、直腸には指を挿入し、方向を確認しながら掘り進めていった。経膣的には子宮頸部・外子宮口様の構造物は確認出来ず、腹腔内からのアプローチへ移行した。

膀胱子宮窩腹膜にモノポーラで切開を加え、膀胱を鈍的に剥離して足側に落とし、子宮頸部の確認を試みた。腹腔内側からも子宮頸部を同定することは不可能だったため、子宮内腔から子宮頸部を同定し、新生膣へアプローチする方針とした。

子宮前壁をモノポーラで縦切開（子宮底部～膀胱子宮窩から2cm手前まで）したところ、子宮内腔から血液の流出が認められた（図4b）。内子宮口を確認するとピンボール程度の構造物があり、同部位を剥離鉗子で拡張したところ、新生膣管と交通した。そこにエクステンションチューブ（シユアプラグ®AD延長チューブ、内径2.1mm）を挿入した（図4c）。FD-1（P-70）の糸をエクステンションチューブに通した後、#3-0Vicrilで3ヶ所結紮し固定した。それを腹腔鏡下に子宮内腔から挿入し、頸管から腔内に留置した。子宮頸部

図2：骨盤部MRI T2強調画像 矢状断
子宮腔内に血液の貯留あり。子宮頸部不明瞭。腔腔は同定できず。

図3：手術方法の模式図

- a：術前の状態。子宮頸部は低形成でありほぼ無い状態。腔は認められない。
 b：経腔的操作で腔管を形成後、子宮前壁を切開し、剥離鉗子を挿入し、子宮口を同定し、拡張した。
 c：子宮内にFD-1を挿入し、その糸にエクステンションチューブをつけ、プロテーゼの分泌物排出口に通し、プロテーゼを腔内に留置している。

図4a：腹腔内所見。血液の貯留が認められる。

図4c：子宮口の同定・拡張目的に子宮内腔からエクステンションチューブを挿入している。

図4b：子宮前壁をモノポーラで切開すると血液の流出が認められた。

図4d：人工真皮で被ったプロテーゼの分泌物排出口穴にエクステンションチューブを通し腔内に留置している。

様の構造物は認められず、ピンホールの拡張によって広がった後壁側を合わせるように縫合した。直腸診で確認しながら、ダグラス窩腹膜で創部を覆った。次に腔側から、エクステンションチューブを人工真皮（ペルナック®）で被ったプロテーゼの帯下排出穴に通し固定した（図4d）。

出血量は570ml、手術時間は5時間25分であった。

術後経過：術後9日目に、FD-1とエクステンションチューブは留置したまま、プロテーゼのみ抜去すると、腔壁の上皮化が不完全であったため出血し、また伸展不良による疼痛強く再度挿入困難となった。そのため、再挿入せず、腔内の洗浄とフィブラストスプレーの散布を行った。その後、腔内洗浄を隔日で行い、術後23日（図6a）で腔壁の粘膜形成が良好であることを確認し、FD-1とエクステンションチューブは腔内に留置したまま術後24日目に一旦退院となった。術後33日目より月経血の排出を認め、術後38日目に外来受診し、子宮頸部の閉塞等ないことを確認した（図6b）。

術後52日目に、月経血排出路確保目的で小さめのプロテーゼを作成し、挿入教育目的に入院となった。プロテーゼの自己挿入訓練を行い、自己挿入可能となった後、術後56日目にFD-1とエクステンションチューブを抜去した。退院後、自宅近くの病院で最初は1週間毎に頸管拡張を行っていたが、術後78日目、86日目に前医を受診した際、再度子宮留血腫の状態となっていた。その際、子宮ゾンデ挿入にて留血腫の排出を認めた。数日の間で、頸管の再狭窄を来す状態であったため、術後122日より再度頸管内にエクステンションチュー

ーブを挿入し縫合固定した。その約1ヶ月後に月経出血を確認したが、今後も月経血排出の経過を見る方針としている。

考 察

腔の先天異常には、種々のものがあり、①先天性腔欠損症、②腔中隔、③腔横隔などが知られている。先天性腔欠損症は比較的稀な疾患で、4000～5000人に1人の割合でみられ、うち5%にのみ機能性子宮が認められるとされている¹⁾。機能性子宮を持たない腔欠損症は、Rokitansky-Kuster-Hauser症候群とアンドロゲン不応症候群に大別される²⁾。女性性器は胎生期のMüller管および尿生殖洞の分化発達により形成される。子宮・腔の形成には、2本のMüller管の形成とその癒合、Müller管下部と尿生殖洞の癒合という過程が必要とされ、各段階での癒合不全や不完全癒合、形成異常が生じることで様々な形態異常が引き起こされることが考えられる³⁾。本症例のような頸部の形成不全あるいは無形成は、Müller管発生の比較的初期の異常により起こると考えられる^{4,5)}。

人工造腔術はDupuytren (1817)²⁾ が開始したのが最初とされ、以後さまざまな方法が報告されている。治療法には非観血法と観血法があるが、中心は観血法である。非観血法としては、腔前庭粘膜を圧迫伸展させ腔腔を作るFrank法がある⁶⁾。観血法の方法としては、元来腔のあるべき場所を掘削し、新生腔の内面を、何を用いて覆うかで違いがある。代表的なものとして、腸管、皮膚、腹膜、人工真皮などが使用されている。それぞれ、腔管の内壁に、S状結腸を用いるRuge法⁷⁾、臀

図5a：術後23日目の腔内の所見
腔内の粘膜形成を認める。

図5b：術後38日目の腔内の所見
腔粘膜の色調はピンクで上皮化し、伸展も認められる。

部や大腿よりデルマトームを用いて採皮した遊離皮膚弁を用いるMcIndoe 法⁸⁾、Douglas 窩腹膜を用いるDavydov 法⁹⁾ 等がある。

さらにそれぞれの術式で変法、改変がなされている。それぞれの術式の問題点としては、腸管を利用する Ruge 法では手術難易度・侵襲度が高く、術後腸管内が扁平状皮化するまで粘液性の分泌物が多く感染を起こしやすいことが挙げられる。腹膜を利用する Davydov 法では、子宮が存在する場合は不可能である。

McIndoe法は、Abbeらが1898年に報告した方法⁸⁾ である。本法は、膣入口部を切開して人工的に新生膣をつくり、そこへ大腿か臀部からデルマトームを用いて作成した遊離皮弁を作成し、プロテーゼに巻き付け装着する。そして、一定期間プロテーゼを挿置したままにして新生膣の狭縮を防ぎ、膣壁表面を上皮化させて永久膣腔をつくる方法である。遊離皮弁を用いたMcIndoe法は、萎縮傾向が強く、大きな瘢痕が残るなどの欠点があるため、S状結腸を用いるRuge法¹⁰⁾ に移行し、さらに現在では侵襲の少ない人工真皮を用いたMcIndoe改良術式^{11,12)} が考案され実施されている。本症例でも、侵襲度、美容上の問題などを考慮しMcIndoe 改良術式は優れた方法と考え、この術式で手術を施行した。

本症例のような機能性子宮を有する膣欠損に対しては、かつては子宮全摘術が推奨されていたが、近年は 妊孕性を考慮し子宮を温存する傾向にある⁴⁾。また開腹手術での報告¹³⁻¹⁵⁾ が多い。その中でFedeleらはより低侵襲で整容的にも優れている腹腔鏡を用いた術式を 2008 年に報告している¹⁶⁾。本症例は当院での過去2回の開腹手術を参考に、膣・子宮頸部の結合部を維持するために、FD-I・エクステンションチューブ・人工真皮付きプロテーゼをオリジナルに作成し、低侵襲で整容性に優れた腹腔鏡下に留置を行った。また、機能性子宮を有する膣欠損症に対して、腹腔鏡で手術を行う場合には、本症例と同様に子宮頸管の開口を行った後、新生膣とつなげる手法を用いた症例報告が散見されているが、新生膣をどのように作成するかは各症例において異なった工夫がされている。機能性子宮をもつ膣欠損症では、子宮頸管が欠損している場合、造膣とともに重要なのは人工頸管の保持管理である¹⁾。頸管の狭窄予防管理が不十分であれば直ちに狭窄してしまい、子宮全摘術を止むを得ない選択肢とする報告が見られている¹⁷⁾。岡垣らの報告では術後に再手術・再々

手術を施行したが、月経血排出路の確保が不能であった¹⁸⁾。人工頸管の再狭窄予防対策に関して、一戸ら¹⁾ は人工頸管にLippes Loopを挿入しており、小林ら⁴⁾ はヒスキャスを挿入している。本症例では、FD-Iとエクステンションチューブを連結させたものを頸管内に留置し、さらにプロテーゼの分泌物排出穴に通し、留置することで、頸管・新生膣、両方の狭窄予防を行った。

造膣術後のプロテーゼ装着に関しては、プロテーゼを使用しなくても膣の狭窄や短縮は起こらないという報告¹⁶⁾ もされているが、プロテーゼを使用することで扁平上皮による新生膣の再生が促進されることや、パートナーが存在しない場合には膣腔長の維持に有効であり、狭窄予防としても術後の後療法として広く使用されているのが実際である¹⁹⁾。熊澤らは、酸化再生セルロースを使用したMcIndoe法にて造膣後、術後6日目まで酸化再生セルロース膜で被覆したプロテーゼを新生膣に留置し、7日目からは一旦抜去後に、自己挿入指導し膣腔が扁平上皮化するまで連日就寝時に装着管理としている¹⁹⁾。本症例においては、術後9日目に一旦プロテーゼを抜去し、出血と伸展不良による疼痛で再度プロテーゼを挿入することが困難となった。本症例と熊澤らの症例とでは、子宮を温存し、子宮頸部を膣とつなげている点が異なっている。また、本症例のように、機能性子宮を有する膣欠損症において、術後に人工真皮で被覆したプロテーゼを用いて新生膣狭窄を予防した症例の報告は未だ見られず、術後のプロテーゼの適切な抜去時期に関しての検討はなされていない。本症例のように子宮頸部と新生膣を縫合した場合においては、造膣術のみ行った場合と比較し、プロテーゼ抜去時の出血の可能性も高くなると推察され、術後抜去時期に関しては、今後検討が必要かと思われる。

また、新生膣の狭窄予防に関して、上皮新生促進目的に、ソルコセリル膣坐剤（幼牛血液抽出物）や感染予防ゲンタシンクリーム0.1%（ゲンタマイシン硫酸塩）の注入⁴⁾、エストロゲン含有クリームの膣管注入¹⁹⁾ などの報告がある。本症例では、新生上皮促進目的に、膣内の洗浄とフィブラストスプレーの散布を行った。

また、Zarou et al²⁰⁾ は頸管閉鎖症に対して頸管保持の方法を考案しつつ、6年後に妊娠、出産した症例を経験しており、頸管の大切さを述べている¹⁾。本症例でも、流早産のリスクは高まるが帝王切開にて妊娠・出産は不可能ではないと考え

る。

本症例では約4ヶ月の時点で数回頸管の狭窄を繰り返し、頸部にエクステンションチューブを留置したり、一時期週に1回程度の頸管拡張などの処置を要しており、今後も新生頸管・腔の維持には注意が必要であると考えられる。

結 語

機能性子宮を有する腔欠損症に対して、腹腔鏡補助下造腔術（人工真皮を用いたMcIndoe法改良術式）を施行した1例を経験した。治療法の確立していない本症例に対し様々な治療が試みられており、今回の治療について報告することを患者及びその家族から同意を頂いた。若年患者の多い本疾患に対し、腹腔鏡補助下での手術は低侵襲で整容性も良く、有用であると考えられる。また、形成した腔・子宮結合部を維持していくためには、今後も外来での処置を継続させていく必要があると考えられる。

本論文の要旨は第59回日本産科婦人科内視鏡学会学術講演会において発表した。

利益相反：すべての著者は開示すべき利益相反はない。

参考文献

- 1) 一戸喜兵衛、関敏雄：機能性子宮をもつ腔欠損症の治療、日本産婦人科学会雑誌、1985；Vol.37, No2, 307-312.
- 2) 竹田省、平松祐司、小西郁生 他：Müller管発生異常 疾患概念、術前検査、OGS NOW No.7 子宮奇形・腔欠損・外陰異常・性別適合の手術 病態理解と術式まるとマスター、2011；No.7, 8-64.
- 3) 岩端俊輔、川内博人、荻野弓希子 他：機能性子宮を有する子宮頸管閉鎖・上部腔欠損の治療に腹腔鏡・子宮鏡下手術の併用が有用であった一例、日産婦内視鏡学会、2014；29：502-507.
- 4) 小林麻美、福井淳史、船水文乃 他：子宮頸部低形成・腔欠損に対し腹腔鏡補助下子宮頸管開口術・腔形成術を施行した一例、青森臨産婦誌、2011；26：30-36(88-94).
- 5) 塩沢丹里、小西郁生：子宮頸部の形態と機能。In: 性器発生・形態・機能、新女性医学体系、2001；73-79.

- 6) Frank RT : The Formation of an artificial vagina without operation. Am J Obstet Gynecol 35 : 1053-1055, 1938.
- 7) Ruge E : Ersatz der Vagina durch die Flexur mittels Laparatomie. Deut Med Wschr 1914 ; 40 : 120-2.
- 8) McIndoe AH, Banistier JB : An operation for the cure of congenital absence of vagina. J Obstet Gynecol Br Emp 1938 : 45 : 490.
- 9) Davydov SN : Colpopoiesis from the peritoneum of the utero-rectal space. Obstet Gynecol 1969 : 12 : 55-57.
- 10) 関場 香、平松祐司：S状結腸法による人工造腔術、産婦人科治療、1990；61：993-1003.
- 11) Noguchi S, Nakatsuka M, Sugiyama Y, et al : Use of artificial dermis and recombinant basic fibroblast growth factor for creating a neovagina in a patient with Mayer-Rokitansky-Kustner-Hauser syndrome. Hum Reprod. 2004 ; 19 : 1629-32.
- 12) 平松 祐司、三橋直樹、長田尚夫 他：人工真皮の種類と人工造腔術への応用、産婦人科手術、2004；15：123-8.
- 13) Chakravarty B, Konar H, Chowdhury NN : Pregnancies after reconstructive surgery for congenital cervicovaginal atresia. Am J Obstet Gynecol 2000 ; 183 : 421-423.
- 14) Defferges JV, Haddad B, Musset R, et al. Utero-Vaginal anastomosis in woman with uterine cervix atresia : long-term follow up and reproductive performance. A study of 18 cases. Hum Reprod 2001; 16 : 1722-1725.
- 15) Jasonni VM, La Marca A, Matoni G : Utero-vaginal anastomosis in the treatment of 2004cervical atresia. Acta Obstet Gynecol Scand 2007 ; 86 : 1517-1518.
- 16) Fedele L, Bianchi S, Frontino G, et al : Laparoscopically assisted uterovestibular anastomosis in patients with uterine cervix atresia and vaginal aplasia. Fertil Steril, 2008 ; 89 : 212-216.
- 17) Fujimoto VY et al : Congenital cervical atresia: report of seven cases and review of the literature. Am J Obstet Gynecol 1997; 177: 1419-1425.
- 18) 岡垣竜吾、石原 理：子宮留血腫を繰り返す子宮頸管閉鎖に低用量ピル連続内服が有効で

あった一症例、日産婦関東連会誌、2010; 47: 405-409.

- 19) 熊澤由紀代、熊谷仁、金森勝裕：酸化再生セルロース膜を用いて造膣術を行った膣欠損症の1例、Akita J Med, 2014 ; 41 : 35-39.
- 20) Zarou, G.S., Acken, H.S. and Brevetti, R.C. : Surgical management of congenital atresia of the cervix. Am J Obstet Gynecol 1961; 82 : 923.

投稿日：2019年3月28日

採択日：2019年10月19日