

経尿道的に治療しえたミューラー氏管嚢胞の1例

京都大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 吉田 修教授)

藤元 博行, 荒井 陽一, 飛田 収一

西尾 恭規, 岡田 裕作*, 吉田 修

TRANSURETHRAL UNROOFING OF THE MÜLLERIAN DUCT CYST: A CASE REPORT

Hiroyuki FUJIMOTO, Yoichi ARAI, Shuichi HIDA,

Yasunori NISHIO, Yusaku OKADA and Osamu YOSHIDA

From the Department of Urology, Faculty of Medicine, Kyoto University

Management of Müllerian duct cyst depends on the size and symptomatology. Here we report a case of recurrent Müllerian duct cyst which was treated successfully by transurethral approach. A 57-year-old man was first admitted because of dysuria in 1981. Under the diagnosis of Müllerian duct cyst, he underwent resection of the cyst by suprapubic retrovesical approach that resulted in incomplete extirpation. In 1982, he was readmitted for recurrence of the cyst. Excision by transsacral approach was unsuccessful because of severe adhesion. He was followed by periodic puncture of the cyst and alcohol instillation. In 1988, he was hospitalized because of persistent urinary symptoms. Since open surgical procedure was thought to be difficult, it was replaced by transurethral management. A cyst bulging into the trigone was found with a cystoscope and the bladder wall over the cyst was resected transurethrally until the cyst was entered. A 2 cm opening between the bladder and the cyst was created with a resectoscope. Follow up CT scan two months later demonstrated sufficient communication between the bladder and the cyst. The patient voided well with no discomfort. We believe that transurethral unroofing of the cyst provides a safe treatment in selected cases.

(Acta Urol. Jpn. 35: 1955-1959, 1989)

Key words: Müllerian duct cyst, Endoscopic management

緒 言

ミューラー氏管嚢胞はミューラー氏管の遺残より発生するものでその治療はおもに外科的切除が試みられてきた。外科的切除において嚢胞が周囲組織と強固に癒着している場合には、周囲組織の損傷の危険から完全切除が不可能な場合が多く、その場合嚢胞の再発を見ることがある。

今回われわれは再発性ミューラー氏管嚢胞に対して経尿道的に膀胱三角部付近を切除し嚢胞との間に瘻孔作成を行い良好な成績を得たので報告する。

症 例

患者: 56歳, 男性

主訴: 尿閉

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1981年2月尿閉となり、ミューラー氏管嚢胞の診断を受けた。同年3月、経腹的切除を試みるも、完全切除不能であった。1982年5月嚢胞再発を認め、経仙骨的に嚢胞の切除を試みるも癒着強度のため切除不能であった。

その後1988年4月まで外来にて約2カ月に一度、嚢胞穿刺およびアルコール注入を繰り返すも改善傾向認めず、同年6月、根治的治療目的にて当科再入院となった。

入院時現症: 体重 85 kg, 身長 172.2 cm。下腹部に柔らかな腫瘤を触知し、直腸診において前立腺後方正中部に大きな腫瘤を触知した。

入院時検査所見 一般検査, 血液生化学では異常は認められなかった。検尿所見では潜血(+), 蛋白(+), RBC 5~6/hpf, WBC 5~6/hpf をみとめた。

入院後施行した経腹的超音波検査において膀胱後面

* 現: 滋賀医科大学泌尿器科教室

に位置する直径 8.7 cm×8.3 cm の辺縁整で内部が hypoechoic な病変を認めた。また DIVP にて左腎に 10 cm×10 cm の腎嚢胞と膀胱底の挙上を認めた。逆行性膀胱尿道造影にて精丘部に辺縁不正な陰影欠損と膀胱の前方への著明な圧排像を認めた (Fig. 1)。膀胱鏡検査においては、同部位に表面不整な腫大した精丘と思われる構造物を認めた。

入院時の CT 像では膀胱後面正中部に位置する肥厚した壁をもつ単房性の巨大嚢胞を認めた (Fig. 2)。前立腺との境界は不明瞭であった。

超音波ガイド下に嚢胞穿刺を施行し、約 50 cc の嚢胞液を吸引した。嚢胞液は透明で黄色調であり、精

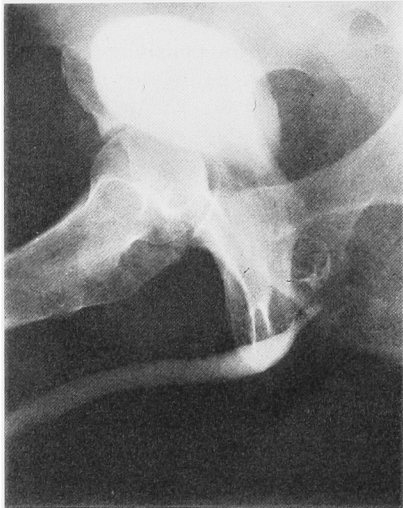


Fig. 1. Retrograde cysturethrogram shows irregular filling defect at posterior urethra and anterior deviation of the bladder.

子や出血等は認めなかった。また細胞診は Papanicolaou class I であった。嚢胞穿刺液の分析結果を Table 1 に示す。

精嚢造影は精管の結紮後であったため施行しなかった。

以上よりミューラー氏管嚢胞の再発と診断した。これまでの経過からの開放手術が困難と判断され経尿道的瘻孔作成を施行した。

手術所見: Resectoscope を膀胱内に挿入したところ膀胱粘膜には病変は認めず、膀胱頸部から三角部の著明な隆起を認めた。膀胱頸部と三角部の間で膀胱壁の切除をはじめた。切除部位は癒痕様の硬さで深さ約 1 cm 切除したところ、嚢胞内に到達し、約 600 cc の嚢胞内容物の流出を見た。さらに瘻孔を直径 2 cm まで拡大切除した (Fig. 3)。嚢胞内を観察したところ嚢胞内壁の上半分は前回の手術の影響によると思われる壊死組織に覆われていた。また下方は粘膜様を呈していた (Fig. 4)。

嚢胞と瘻孔のまわりを電気凝固し膀胱内に尿道カテ

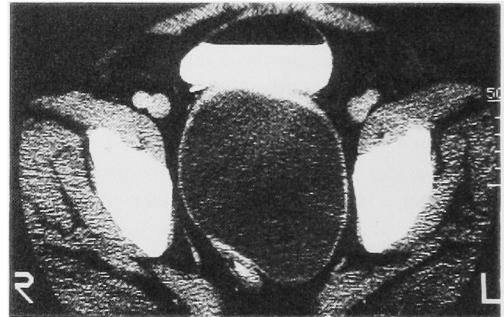


Fig. 2. Computed tomography reveals large retrovesical cystic mass.

Table 1. Analysis of the fluid of the Müllerian duct cyst

1 BIOCHEMICAL STUDY		2 TUMOR MARKER	
GOT	2 IU/L	Acid P	8000U/L (0 4.2)
GPT	16 IU/L	PSAP	7640U/L (0 1.5)
LDH	3188 IU/L	CA-19-9	41800U/ml (<37)
ALP	33 g/dl	CEA	17.1ng/ml (<2.5)
γ-GPT	1060 IU/L	AFP	<3.0ng/ml (<15)
LAP	624 IU/L	PA	12896ng/ml (<3.0)
AMY	201 IU/L	γ-Sm	56500ng/ml (<4.0)
TP	4.4 g/dl		
ALB	2.9 g/dl	3 CYTOLOGY	
CRE	1.2 mg/dl	CLASS I	
BUN	6.5 mg/dl	4 CULTURE	
GLU	14 mg/dl	NEGATIVE	
α-HBD	809 IU/L	5 OTHERS	
Na	138 mEq/L	NO FINDINGS OF SPERM	
K	4.1 mEq/L		
Cl	108 mEq/L		
Ca	7.1 mg/dl		

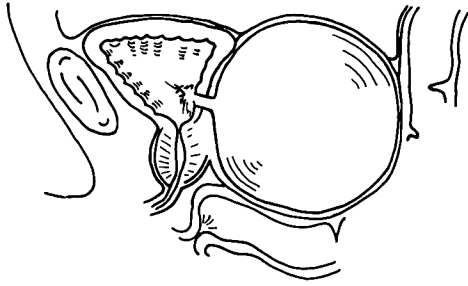


Fig. 3. Schematic illustration of transurethral unroofing of the Müllerian duct cyst

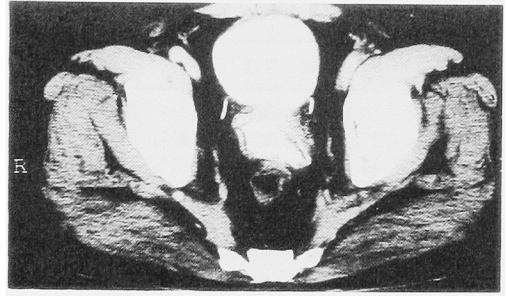


Fig. 5. Computed tomogram two months later shows remarkable shrinkage of the cyst and good communication between the bladder and the cyst

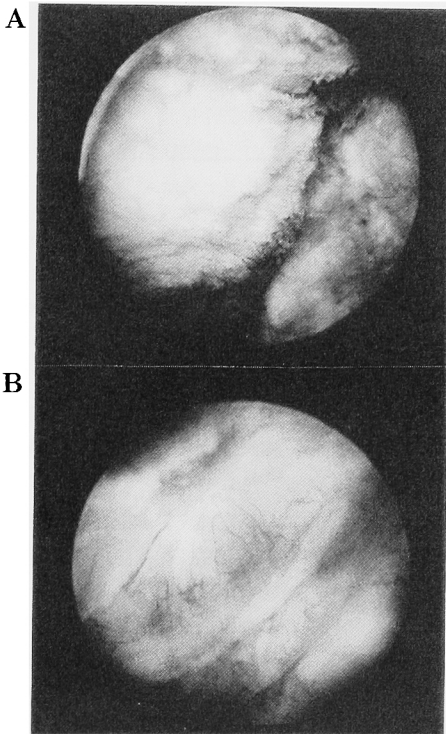


Fig. 4. Cystoscopic finding of the cyst: (A) Upper half is covered with necrotic tissue. (B) Lower half has mucosa-like appearance.

ーテルを留置し手術を終えた。術中灌流液の漏出等の合併症は見られなかった。

術後経過は順調で、術後5日目に施行した膀胱造影にて嚢胞と膀胱との交通は保たれていた。また排尿時膀胱造影を施行したところ、約50ccの残尿を認め二段排尿の状態であった。

術後2カ月目に施行したCTでは嚢胞は瘻孔をとらして膀胱と交通を保ち著明に縮小していた (Fig. 5)。

患者は現在、自尿はスムーズで、検尿では軽度の膿尿を見るも結石形成等は認めず、経過観察中である。

考 察

ミューラー氏管嚢胞は、1873年 English¹⁾ が初めて剖検例において発見して以来現在まで約100例以上の報告を見るが、本邦では1947年に清水²⁾ が生後3カ月の男子乳児を最初に報告して以来自験例も含め調べた限りでは、15例の報告を見るに過ぎない。

ミューラー氏管嚢胞は、本来女性の子宮、卵管にあたるミューラー氏管の遺残より発生する疾患とされている。ミューラー氏管は正常男子の場合胎生10カ月で退化しその遺残物としてその中樞側は、睪丸の上極に存在する睪丸垂として、またその末梢側は、男性子宮として残存するのみである。しかし、ミューラー氏管嚢胞はその退化の過程において何らかの原因により、消退せず残存し、嚢胞化したものであるとされている³⁾。その原因については詳細は不明であるが胎生9週頃より胎生睪丸由来のミューラー氏管を消退させる factor (Müllerian duct regression factor) が何らかの原因で欠損しているか、またはその分化過程における問題か、factorがあってもその receptor が欠損しているために退化しないなどの原因によるといわれている⁴⁾。

一方ミューラー氏管嚢胞と utricule cyst との区別については、諸家いろいろ議論のあるところである^{5,6,21)} Sharlip⁵⁾ によれば、ミューラー氏管嚢胞は utricule と交通をもたず前立腺の後方に位置する比較的大きな嚢胞で、先天奇形とは直接関係しないのにたいして utricule cyst は utricule と交通しており尿道下裂や性器の奇形を伴うという。また、Poppel⁶⁾ はその理由について以下のように説明している。発生学的にミューラー氏管は中胚葉由来であり、ミュー

Table 2. Summary of 15 Cases of Müllerian duct cyst in Japan

No	年齢	著者	年	主訴	奇形症	尿道との交通	嚢胞の大きさ	初期治療
1	3 m	清水ら	1947	尿閉	—	—	巨大な嚢胞	全摘不能
2	10y	能中ら	1961	頻尿、血尿	+	+	4 × 3cm	全摘
3	54y	六条ら	1966	血尿	—	—	4 × 4cm	全摘
4	26y	菅間ら	1974	下腹部不快	—	—	2.5 × 2.5cm	全摘
5	52y	中園ら	1976	尿閉	—	—	巨大嚢胞	全摘不能
6	20d	三浦ら	1982	発育異常	+	+	母指等大	嚢胞マージ
7	3y	竹内ら	1982	血尿	—	—	手拳大	全摘
8	5m	掘沢ら	1983	多発奇形	+	+	成人手拳大	全摘
9	50y	岩井ら	1984	尿閉	—	—	超鶏卵大	全摘不能
10	72y	北原ら	1984	頻尿	—	+	1.5 × 1.5cm	TUR-P
11	51y	北原ら	1984	排尿痛	—	—	1.5 × 1.5cm	嚢胞穿刺
12	76y	北原ら	1984	夜間頻尿	—	—	3cm 程度	嚢胞穿刺
13	56y	北原ら	1984	頻尿	—	+	3 × 3cm	嚢胞穿刺
14	22y	小川ら	1986	—	—	—	不明	全摘不能
15	56y	自験例	1988	尿閉	—	—	超鶏卵大	全摘不能

*1右停留睾丸、陰茎奇形

*2両側の停留睾丸

*3左無眼球症、右外耳道狭窄、両側停留睾丸、陰茎奇形、脊椎肋骨奇形等々

ーラー氏管嚢胞はその部分的癒合不全による。ミューラー氏管の盲端は内胚葉由来の尿生殖洞の上皮とともにミューラー結節 (Müllerian tubercle) となる。

これは増殖し管腔となり、前立腺小室とよばれる内胚葉由来の構造物となる。一方尿道はその大部分が内胚葉由来である。前立腺小室はときに拡大し utricule cyst となるがそのとき尿道下裂や intersexual abnormality を合併することがあるという。本邦例では合併奇形のある症例では尿道との交通が認められた (Table 2)。

症状は, Schurke ら⁶⁾によれば, ミューラー氏管嚢胞の症状の42%は頻尿, 排尿困難, 尿失禁などの刺激症状であり, 29%が尿線の低下, 排尿時間の延長などの尿道圧迫症状, 16%が尿閉であるという。その他射精痛や性交不能, 血尿, 尿道脱等の症状がときに見られる。

本症の診断は, 直腸診にて正中部に比較的大きな左右対象の柔らかい腫瘤で前立腺の後方に位置するときこれを疑い, 膀胱鏡, 逆行性膀胱造影や精嚢造影にて腫瘤による圧杯像等が見られる。さらに超音波検査や CT scan にて腫瘤が前立腺と直腸の間に存在すればほぼ確診できる⁷⁻⁹⁾。また MRI では, 内容物が漿液性である場合は, 尿とほぼ同様の intensity であるが内容物に出血があるとその intensity はいろいろであるという¹⁰⁾。

内容物には元来精子が存在しないといわれてきたが¹¹⁾, 最近ミューラー氏管嚢胞に開口した精管開口異常の症例が報告されており¹²⁾注意が必要である。内容

物については漿液性のものから粘液性のものもあり, 色についても黄色調のものから褐色調まで, 出血のあるものなどさまざまである⁶⁾。また嚢胞内に clear cell carcinoma の認められた症例の報告もあり細胞診などは重要である¹³⁾。

鑑別診断として前立腺嚢胞, 精嚢嚢胞, 射精管嚢胞, 精管膨大部憩室, 膀胱憩室などや後腹膜腫瘍, 奇形腫等の新生物がある。

ミューラー氏管嚢胞の治療は, 嚢胞穿刺, 薬液注入の保存的療法と手術療法としては経尿道的な開口部拡張や今回行った瘻孔作成と全摘手術がある⁶⁾。全摘手術の場合その発生学的に骨盤深部にあるという位置関係や, 嚢胞と周囲組織の癒着などにより完全切除が困難なことが多く Shurke らは⁶⁾, 経腹的, 恥骨上式切除の58%は不完全切除で, 完全切除を行なう場合には精嚢, 精管, 前立腺の切除を必要とした場合があると述べている。また能中ら¹⁴⁾は大きなミューラー氏管嚢胞はその壁が膀胱後壁と強固に癒着しており剥離困難となることが多く, これを完全に切除しようとすれば周囲の精嚢, 前立腺, 精管, 膀胱あるいは直腸を損傷する恐れも多く性機能障害や排尿異常または排便異常等を認めることがあり, とくに若年者の場合かならずしも完全切除にこだわらず大部分を切除し周囲組織の保護に努めたほうが賢明であると指摘している。

一方経尿道的治療については, 術後合併症も少なく簡便な方法であるが, 開口部狭窄や結石形成, 嚢胞の再発を見る傾向があるとされている^{6, 15)}。

本邦における初期治療の報告では^{2, 12, 14, 16-22)},

Table 2のごとく比較的小さな嚢胞は、全摘または、経尿道の切除、嚢胞穿刺等で治療しているが大きな嚢胞ではほとんどが全摘不能であり自験例も含め2例に再発を認めている。

今回のわれわれの症例では経腹的、また、経仙骨的な全摘を試みるも不可能であり、嚢胞穿刺、アルコール注入を繰り返したが、改善傾向を認めなかった。再度嚢胞の完全切除を試みた場合には、周囲組織に対する損傷は免れえず、排尿異常、性功能異常や人工肛門作成などが予想されたため、経尿道的な瘻孔作成を選択した。

今回経過も長く嚢胞の縮小などに対する不安はあったが結果は満足のものであった。しかし結石形成、瘻孔自然閉鎖等の問題も残されており、現在嚴重な経過観察中である。

このように再発例や大きくて根治切除が困難と予想されるミューラー氏管嚢胞の治療として、経尿道的な瘻孔作成は有効な治療の一つと考えられた。

以上再発性ミューラー氏管嚢胞の経尿道的瘻孔作成の治療経験について若干の文献的考察を加えて報告した。

結 語

1) 再発性ミューラー氏管嚢胞の経尿道的切除の経験について報告した。

2) 再発性ミューラー氏管嚢胞の治療に経尿道的切除は、適応を選べば安全で有効な方法と考えられた。

本論文の要旨は第125回日本泌尿器科学会関西地方会(1988年12月)において発表した。

文 献

- 1) English V: Über Cysten der hinteren Blasenwand bei Manner. Med. Jahrb, Vienna, 1875
- 2) 清水圭三, 相馬駆量, 小出良金, 高柳富輝: ミューレル氏の一例. 日泌尿会誌 43, 1952
- 3) Moore V and Howe GE: Müllerian duct remnants in the male. J Urol 70: 781-788, 1953
- 4) Devine CJ, Gonzales SL, Stecker JF, Devine PC and Horton CE: Utricular configuration in hypospadias and intersex. J Urol 123: 407, 1980
- 5) Sharlip I: Obstructive azoospermia or oligozoospermia due to Müllerian duct cyst. Fertil Steril 41: 298-303, 1984
- 5) Poppel VH, Vereecken V, Geeter PDF and Verduyn H: Hemospermia owing to utricular cyst. Embryological summary and surgical review. J Urol 129: 608-609, 1983
- 6) Schurke TD and Kaplan GW: Prostatic utricle cyst (Müllerian duct cyst). J Urol 119: 765-767, 1978
- 7) Schwartz JM, Bosniak MA, Hulnick DH, Megibow AJ and Raghavendra BM: Computed tomography of midline cyst of the prostate. J Comput Assist Tomogr 12: 215-218, 1988
- 8) Holm H and Forsberg L: Computed tomography and ultrasound studies of prostatic utricle cyst associated with unilateral renal agenesis. Scand J Urol Nephrol 18: 87-89, 1984
- 9) Rosi P, Bussani F, Vespasiani G, Virgili G, Cesaroni M and Pelliccioli G: Müllerian duct cyst. Clinical evaluation and role of ultrasonography and computed tomography in diagnosis. RAYS (Roma) 10: 77-84, 1985
- 10) Thurnher S, Hricak H. and Tanagho EA: Müllerian duct cyst; diagnosis with MR image. Radiology 168: 23-25, 1988
- 11) Rieser C and Griffin TL: Cysts of the prostate. J Urol 91: 282-286, 1964
- 12) 三浦 猛, 高柳 剛: ミューラー管嚢腫に開口した精管開口異常の一例. 泌尿紀要 28: 173-176, 1982
- 13) Robert WN, Richard BR and Neyle S: Clear cell carcinoma in a Müllerian duct cyst. Am Soc of Clin Pathol 16: 339-341, 1981
- 14) 能中陽一, 鶴田 敦: ミューラー管嚢胞. 泌尿紀要 7: 725-730, 1961
- 15) Felderman T, Schellhammer PF, Devine CJ and Stecker JF: Müllerian duct cyst; conservative management. Urology 29: 31-34, 1987
- 16) 堀沢 稔, 伊藤喬広, 長尾昌宏, 山田 昂, 石黒士雄, 津田峰行, 渡部芳夫, 安井徹郎: Müllerian duct cyst の一例. 日小児外会誌 19: 925-930, 1983
- 17) 中園昌明, 岩田正三: 興味ある前立腺疾患の2症例. 1) 肉芽性前立腺炎 2) Müllerian duct cyst. 日泌尿会誌 67: 652-654, 1976
- 18) 六条正俊, 広田紀昭: ミューラー管嚢胞. 臨泌 22: 39-42, 1968
- 19) 菅間正氣, 小川秀弥, 生亀芳雄: ミューラー氏管嚢胞の一例. 日泌尿会誌 65: 260, 1974
- 20) 北原聡史, 岡 薫, 関根英明: 超音波によって発見されたミューラー管嚢胞の4例. 日泌尿会誌 76: 415-421, 1985
- 21) 竹内秀雄, 吉田 修: 小児のミューラー氏管嚢腫. 泌尿紀要 28: 593-596, 1982
- 22) 岩井哲郎, 中辻史好, 松本 尚, 平尾佳彦, 平松侃, 岡島英五郎: 再発ミューラー管嚢胞の一例. 泌尿紀要 30: 1471-1477, 1984

(1989年3月16日受付)