

二分脊椎症例における膀胱拡大術の 手術適応に関する問題点

— 膀胱拡大術を断念した2症例 —

奈良県立医科大学泌尿器科学教室 (主任: 岡島英五郎教授)

百瀬 均, 岡島英五郎

星ヶ丘厚生年金病院泌尿器科 (部長: 山田 薫)

安川 元信, 吉井 将人, 平田 直也

山本 雅司, 末盛 毅, 山田 薫

UNRESOLVED ISSUES CONCERNING THE OPERATIVE INDICATION OF AUGMENTATION CYSTOPLASTY IN SPINA BIFIDA PATIENTS: A REPORT OF TWO CASES

Hitoshi Momose and Eigoro Okajima

From the Department of Urology, Nara Medical University

Motonobu Yasukawa, Masahito Yoshii, Naoya Hirata,

Masashi Yamamoto, Tsuyoshi Suemori and Kaoru Yamada

From the Department of Urology, Hoshigaoka Koseinenkin Hospital

Augmentation cystoplasty is evolving into a common method of surgical treatment for a low capacity and/or low compliance neurogenic bladder. Although an increasing number of successful results have been recently reported, the operative indication of augmentation cystoplasty is yet to be established. Herein, we report two cases of neurogenic bladder due to spina bifida which required abandonment of augmentation cystoplasty.

The first case was in a 23-year-old female with a severely deformed bladder and right vesicoureteral reflux (VUR). She refused to undergo ileocystoplasty because we could not assure her of postoperative conception which she eagerly anticipated. The second case was in a 19-year-old male with a severely deformed bladder and right VUR. He experienced recurrent episodes of ventriculoperitoneal shunt (V-P shunt) difficulty which required exchanging the shunt tube each time, and each exchange proved to be very difficult or nearly impossible. Based on lengthy neurosurgical consultation, we came to the conclusion that ileocystoplasty was not a preferable treatment of choice for the correction of his disease due to the possibility of V-P shunt infection, which could be fatal. Alternatively, both cases were treated with Cohen's ureteral reimplantation, which resulted in the recurrence of VUR.

These cases presented still unresolved issues concerning the operative indication of augmentation cystoplasty in spina bifida patients.

(Acta Urol. Jpn. 39: 747-752, 1993)

Key words: Augmentation cystoplasty, Spina bifida, Operative indication

緒 言

神経因性膀胱の末期状態ともいえる高度の萎縮膀胱症例に対しては、従来その多くが尿路変更術により治療されてきたが、最近では腸管を利用した各種膀胱拡

大術が施行され、良好な成績が報告されている^{1,2)}。われわれも1987年以降高度の萎縮膀胱を有する二分脊椎症例に対して、積極的に回腸を利用した膀胱拡大術を施行し良好な成績をえているが^{3,4)}、必ずしもすべての症例に対して同手術が施行可能なわけではなく、

その手術適応には未解決の問題点が存在することも事実である。われわれは1987年から1991年の5年間に、本来膀胱拡大術の適応でありながら、特別な理由により同手術を断念せざるをえなかった高度萎縮膀胱症例2例を経験したので報告するとともに、二分脊症椎例に対する膀胱拡大術の手術適応上の問題点について考察を行った。

症 例

症例 1

患者：23歳（初診時年齢14歳），女性

初診：1977年4月10日

主訴：排尿困難

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：生後2日目に脊髄髄膜瘤の診断にて同修復術を受けた。

臨床経過：脊髄髄膜瘤の修復術後、特に泌尿器科的管理を受けていなかったが、1977年4月（14歳時）、排尿困難を主訴に当科を受診、低活動性利尿筋・低活動性括約筋型の神経因性膀胱⁶⁾の診断のもとに、手圧排尿の指導を受けた。なお、下肢麻痺の程度は Shar-rad 分類⁶⁾のVであり、また ventriculoperitoneal shunt (V-P shunt) は挿入されていなかった。その後当科にも受診せず継続的な泌尿器科的管理を受けないうであったが、1987年11月（23歳時）、高熱持続にて近医を受診、急性腎盂腎炎の診断にて入院治療中に左尿管結石を指摘され、同年11月13日当院へ転院となった。当院入院時の KUB にて左小骨盤腔内に 15 mm × 7 mm 大の結石陰影を認めた。IVP にて右側上部尿路に関しては軽度の尿管拡張を認めるも、腎盂腎杯系に異常を認めず、左側は尿路結石の嵌頓によると思われる著明な水腎尿管症を呈していた (Fig. 1)。また、膀胱壁は不整で、高度の変形を呈していた。逆行性膀胱造影では、造影剤 20 ml 注入時に右側膀胱尿管逆流現象 (VUR) grade III⁷⁾ が出現、約 60 ml まで造影剤を注入するも、左側に VUR は認められなかった (Fig. 2)。11月25日、左尿管結石に対して経尿道的尿管切石術 (TUL) を試みるも、膀胱壁の高度の変形および膀胱粘膜の著明な不整のため左尿管口が確認できず、TUL を断念し左腎機能保護のために左経皮的腎瘻造設術を施行した。この時点で高度萎縮膀胱、右側 VUR、左尿管結石に対する根本的治療方法として、回腸利用膀胱拡大術および両側尿管の回腸膀胱への新吻合術を計画した。

患者および家族に対する説明により、同手術療法の意義については十分な理解がえられたが、患者は当時

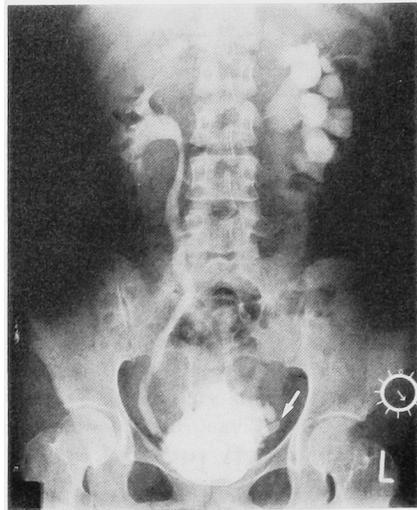


Fig. 1. IVP demonstrates slight hydroureter in the right side and severe hydronephrosis in the left side. Left ureteral stone (arrow) and severe deformity of the urinary bladder are noted.

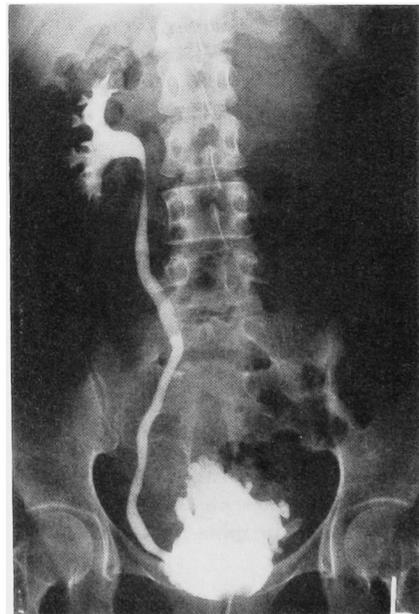


Fig. 2. Reflux cystogram demonstrates left vesicoureteral reflux of grade III.

婚約中であり、将来の妊娠、出産を強く希望した。回腸利用膀胱拡大術施行後に正常な妊娠の継続が確実に可能であるかとの間に対して、われわれは明確な回答を持っておらず、数回の話し合いの後、結局同手術に

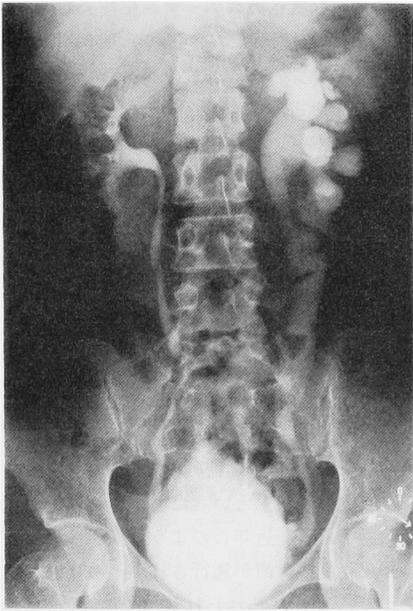


Fig. 3. IVP shows severe hydronephrosis in the left side.

についての承諾をえることができなかった。1989年2月10日、右側 VUR と左尿管結石に対して、左尿管切石術および Cohen 法⁹⁾による両側尿管膀胱新吻合術を施行した。高度の膀胱変形のために膀胱三角部の平坦性は失われており、粘膜下トンネルの作成および右尿管の新吻合は非常に困難であった。左尿管については、膀胱壁内から壁内尿管に嵌頓していた結石を摘出したが、壁内尿管の癒着が高度で剥離が非常に困難であり、尿管膀胱新吻合に際して十分な粘膜下トンネルを作成することが不可能であった。術後2週間目に施行した逆行性膀胱造影にて、左側 VUR grade IV が認められた。術後4週間目に左腎瘻を抜去、5週間目に膀胱留置カテーテルを抜去し、以後2時間毎の間欠自己導尿法 (CIC) を開始し、術後7週間目に退院した。退院後も CIC による時間排尿を厳守していたが、1991年2月の逆行性膀胱造影にて左側 grade IV の VUR に加えて、右側にも grade I の VUR が出現した。1992年3月 (28歳時) の IVP にて右側上部尿路には異常を認めないが左水腎症は手術直後に比べて軽度進行している (Fig. 3)。

症例 2

患者: 19歳 (初診時年齢 5歳), 男性
 初診: 1977年9月26日
 主訴: 尿失禁
 家族歴: 特記すべきことなし

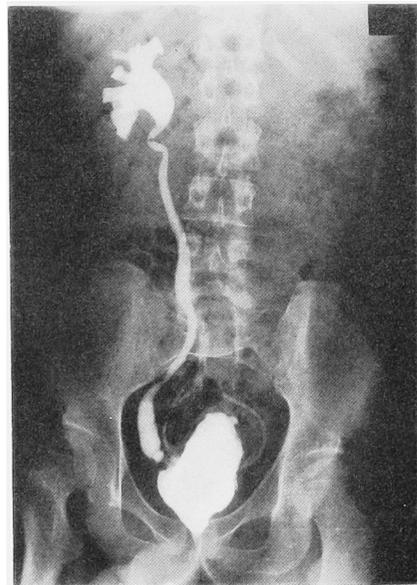


Fig. 4. Reflux cystogram demonstrates right vesicoureteral reflux of grade IV and the severely deformed urinary bladder.

既往歴: 生後3日目に脊髄髄膜瘤の診断にて同修復術を受けた。生後1カ月目に水頭症に対して ventriculoatrial shunt 造設術を施行するも shunt valve の機能不全のため、1歳7カ月時に V-P shunt に変更、4歳時再度の shunt trouble のため V-P shunt tube の入れ換えを受けた。

臨床経過: 出生後より泌尿器科的管理を受けていなかったが、1977年9月 (5歳時)、尿失禁を主訴に当科を受診し、低活動性利尿筋・低活動性括約筋型の神経因性膀胱⁵⁾の診断のもと、手圧排尿の指導を受けた。なお、下肢麻痺の程度は Sharrard 分類の IV であった。以後、手圧排尿にて良好に経過していたが、1988年4月 (16歳時) の逆行性膀胱造影にて右側 VUR grade I が出現、1990年3月の同検査にて右側 VUR は grade II へ進行し、同時に膀胱変形が認められたため、同年7月から CIC を開始した。その後も CIC による時間排尿を継続していたが、同年2月には右側 VUR は grade III へ、さらに1991年9月には grade IV へと進行し、膀胱変形も著明に増悪していた (Fig. 4)。また左側にも一過性の VUR grade I を認めた。さらにこの間腎盂腎炎によると思われる発熱を頻回に繰り返していた。なお、IVP 上水腎症は認められなかった。この時点で、高度萎縮膀胱、右側 VUR grade IV に対して、回腸利用膀胱拡大術および右側尿管の回腸膀胱への新吻合術を計

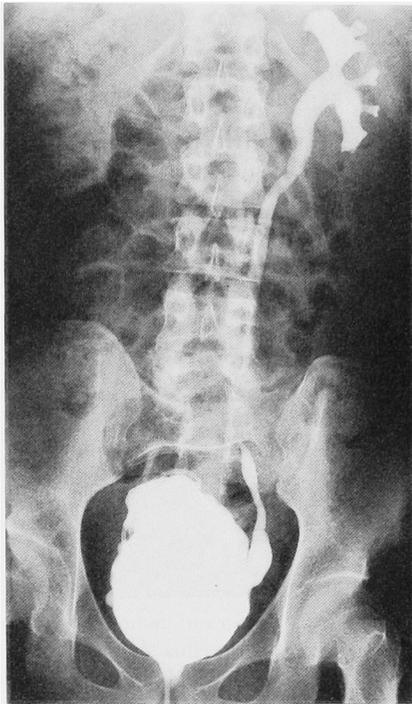


Fig. 5. Reflux cystogram demonstrates left vesicoureteral reflux of grade IV.

画した。

手術施行に先立って、留置中の V-P shunt tube の取扱いについて、当院脳神経外科医と協議した。この症例は過去において頻回に V-P shunt の閉塞、機能不全を起こし、その都度 shunt tube の入れ換えを行っており、この時点では再度の shunt tube の入れ換えは非常に困難を伴うことが予想された。従って、回腸利用膀胱拡大術を行う際には、確実に shunt tube の汚染を防ぎうる方法を講ずる必要があった。

協議の結果、術中に shunt tube 先端を清潔な袋で包み、術野から隔離する方法が最も有効であると思われたが、この方法でも感染の危険を完全に否定できるわけではなく、shunt tube の感染が生じた場合の重篤さを考慮して、回腸利用膀胱拡大術を断念せざるをえなかった。

1991年11月6日(19歳時)、右側 VUR grade IV に対して Cohen 法による両側尿管膀胱新吻合術を施行した。膀胱壁は著明に肥厚しており、尿管の剝離は容易ではなかった。また、高度の膀胱変形のために膀胱三角部の平坦性は失われており、粘膜下トンネルの作成および尿管と膀胱の新吻合には困難を要した。術後経過は良好であったが、術後3週間目に施行した逆行性膀胱造影法にて左側 VUR grade III が認めら

れた。この後膀胱留置カテーテルを抜去し、CIC による時間排尿を開始した。さらに術後4週間目の逆行性膀胱造影法では左側 VUR grade IV に加えて、右側 VUR grade I が出現した。1991年12月13日に退院、以後も CIC による時間排尿を継続しており、1992年6月(20歳)の時点で、左側 VUR grade IV を呈するも、右側 VUR を認めず (Fig. 5)、IVP にて右側上部尿路は正常、左側は軽度の水腎、水尿管症を呈している。

考 察

神経因性膀胱の末期状態ともいえる高度の萎縮膀胱は、膀胱壁の肥厚、膀胱コンプライアンスの低下、膀胱容量の減少により、尿管膀胱移行部通過障害 VUR、あるいは高度の尿失禁といった種々の病態を惹起する重篤な状態である。近年このような症例に対して腸管を利用した膀胱拡大術が施行され、その良好な成績が報告されている^{1,2)}。われわれも1987年以降、高度の萎縮膀胱を有する二分脊椎症例に対して回腸を利用した膀胱拡大術を積極的に施行し、良好な成績をえており^{3,4)}、今後同手術療法は、高度の萎縮膀胱を呈する神経因性膀胱症例に対する、確立された治療法として定着するものと思われる。しかし、神経因性膀胱症例に対する腸管を利用した膀胱拡大術の適応について明確な見解を示した報告はなく、このことは同時に、同手術の禁忌についても明確な見解がないことを意味する。

腸管を利用した膀胱拡大術を受けた女性患者がその後正常な妊娠、分娩が可能であるか否かという問題について、現在明確な答えはえられていない。腸管を利用した膀胱拡大術自体は、従来結核性萎縮膀胱に対して比較的一般的に行われてきたにもかかわらず、その妊娠出産例についての報告は非常に少ない。1962年に Goodwin ら⁹⁾ が ileocystoplasty 施行後に妊娠分娩に成功した1例を報告しているが、その後本邦では1966年に楠ら¹⁰⁾ が結核性萎縮膀胱に対して Tasker 法を施行後妊娠、自然分娩に成功した1例を、ついで1967年に森ら¹¹⁾ が同様の1例を報告している。また最近では Hill ら¹²⁾ が米国における15例を集計し報告している。腸管を利用した膀胱拡大術施行後の妊娠においては以下の4つの問題点が考えられる。すなわち、1) 腸管によって形成された膀胱が妊娠子宮のために圧迫されることによる尿の充満、排出障害、2) 妊娠子宮により空置腸管の腸間膜が圧迫されることによる空置腸管および膀胱との吻合部の血行障害、3) 空置腸管の腸間膜による妊娠子宮の発育障害、4) 通常、妊娠に伴う小腸全体の位置異常が生じるが、これが空置

腸管の腸間膜へ嵌頓することによるイレウスの発生である。さらに拡大膀胱への尿管の新吻合を併用した症例では、尿管の走行が非生理的になり、このため生理的条件下よりも妊娠子宮による尿管の圧迫が増強する可能性がある。

前述のごとく腸管利用膀胱拡大術施行後の妊娠出産に関しては国内外共に報告例が認められることから、必ずしも不可能なことではないと思われるが、その症例数はいまだ少なく、妊娠、出産の遂行には泌尿器科医、産婦人科医による厳重な管理が必要である。informed consent の重要性が強く認識されつつある現在、将来の妊娠、出産を強く希望する症例に対しては、腸管利用膀胱拡大術施行後の妊娠、出産に伴う危険性についても十分に説明しなくてはならず、症例1のようにあくまで妊娠、出産を希望する症例においては同術式を遂行することはできない。われわれは今までに女性二分脊椎症例の妊娠、出産を2例報告しているが^{13,14}、今後、脳神経外科、整形外科および泌尿器科的治療法の進歩による長期生存症例における quality of life の向上に伴い、女性二分脊椎症例の妊娠、出産の機会は増加するものと思われる。女性二分脊椎症例における膀胱拡大術の適応を決定する際には、個々の症例について将来の結婚、妊娠の可能性も考慮に入れることが必要であるとともに、今後症例数の蓄積、および膀胱拡大に用いる各種腸管による妊娠への影響の検討などを通して、この問題を解決していく必要がある。

V-P shunt が造設されている症例に対して、腸管を利用した膀胱拡大術を施行する際の問題点としては、1) shunt tube を介しての逆行性感染、2) 拡大された膀胱に対する shunt tube の圧迫による損傷、穿孔が考えられ、最近それぞれについての報告がみられる^{15,16}。shunt tube を介した逆行性感染が随腔内に波及した場合、致命的になりうることはいうまでもないが、shunt tube が拡大膀胱を圧迫し、穿孔に至った場合も当然逆行性感染の危険性が高く、いずれにしても腸管利用膀胱拡大術の際に shunt tube に関係した合併症が発生した場合は、非常に重篤なものになる可能性が高いと考えられる。しかし最近の報告によれば、V-P shunt tube 留置症例は必ずしも同手術の禁忌とはならず、一般的には shunt tube 先端をバックすることで術中汚染を防ぎ、図らずも shunt tube の感染が生じた場合には抗生物質の全身投与と同時に shunt tube を抜去、入れ換えることで対処している¹⁵。しかし、症例2のように、shunt tube の入れ換えそのものが非常に困難な症例の場合には、どのよ

うな予防法を講じていても、一旦 shunt tube の感染が生じたなら致命的となる可能性が高く、このような症例に腸管利用膀胱拡大術を遂行することはできない。同症例は現在左側 VUR grade IV を有しており、これに対して近い将来 VUR 防止を目的とした再手術を行うつもりであるが、その際、何らかの方法で膀胱拡大術を行うか否かについては、いまだ決めかねている状態である。

脊髄髄膜瘤症例における水頭症の合併頻度は文献的に約80%程度といわれており^{17,18}。決して少ない数字ではない。今後膀胱拡大術はますます積極的に行われていくと思われるが、その場合、今回報告したような症例に遭遇する可能性は十分に考えられる。直接生命予後に関係しうる問題であるだけに、慎重な対応が望まれることはいうまでもないが、脳神経外科医の協力をえて、V-P shunt tube 留置症例に対する安全で確実な対応方法を確立することが必要である。

結 語

高度の萎縮膀胱と VUR を有し、本来膀胱拡大術の適応でありながら、同手術を断念せざるをえなかった二分脊椎症の2例を報告した。

- 1) 28歳女性症例では、将来の妊娠、出産を強く希望したため、術後に正常な妊娠を継続できる確実な保障のない腸管利用膀胱拡大術を遂行できなかった。
- 2) V-P shunt trouble を繰り返していた19歳男性症例では、術中、術後に、致命的な V-P shunt 感染をきたす可能性が完全に否定できなかったため、腸管利用膀胱拡大術を断念した。
- 3) 女性二分脊椎症症例における腸管利用膀胱拡大術の適応を決定する際には、将来の妊娠、出産の可能性についても考慮に入れることが重要であるとともに、今後同手術後の妊娠、出産の可否について、検討を重ねる必要がある。
- 4) V-P shunt 留置症例に対する腸管利用膀胱拡大術は必ずしも禁忌ではないが、個々の症例において、shunt 感染の可能性およびその重篤性について十分に検討することが重要であるとともに、今後安全で確実な対応方法の確立が望まれる。

本論文の要旨は第27回日本パラプレジア医学会において報告した。

文 献

- 1) Lockhart JL, Bejany D and Politano VA: Augmentation cystoplasty in the management of neurogenic bladder disease and uri-

- nary incontinence. *J Urol* **135**: 969-971, 1986
- 2) Sidi AA, Becher EF, Reddy PK, et al.: Augmentation enterocystoplasty for the management of voiding dysfunction in spinal cord injury patients. *J Urol* **143**: 83-85, 1990
 - 3) 末盛 毅, 高橋省二, 夏目 修, ほか: 神経因性膀胱3症例に対する膀胱拡大術の経験. *泌尿紀要* **36**: 77-82, 1990
 - 4) 百瀬 均, 山田 薫, 末盛 毅, ほか: 二分脊椎症の尿路管理における手術療法の有用性と問題点. *日本パラプレジア医学会誌* **6**: 56-57, 1993
 - 5) 山田 薫, 中新井邦夫, 大園誠一郎, ほか: 神経因性膀胱における排尿効率改善に関する診断と治療. *泌尿紀要* **29**: 739-754, 1983
 - 6) Sharrard WJW: Paralytic deformity in the lower limb. *J Bone Joint Surg* **49-B**: 731-747, 1967
 - 7) International Reflux Committee: Medical versus surgical treatment of primary vesicoureteral reflux: a prospective international reflux study in children. *J Urol* **125**: 277-283, 1981
 - 8) Cohen SJ: Ureterozystoneostomie. Eine neue Antirefluxtechnik. *Aktuelle Urologie* **6**: 1-8, 1975
 - 9) Goodwin WE, Betebaugh HS, Haynes VE, et al.: Full-term pregnancy and spontaneous delivery after ileocystoplasty. *JAMA* **181**: 906-908, 1962
 - 10) 楠 隆光, 佐藤昭太郎, 金子佳雄: 廻腸膀胱形成術 (Tasker) 後の分娩成功例. *臨皮泌* **20**: 901-904, 1966
 - 11) 森 幸夫, 原 健, 後藤正彦: 廻腸膀胱形成術後の自然分娩の1例. *日泌尿会誌* **58**: 1219-1222, 1967
 - 12) Hill DE and Kramer SA: Management of pregnancy after augmentation cystoplasty. *J Urol* **144**: 457-459, 1990
 - 13) 山本雅司, 吉井将人, 高橋省二, ほか: 妊娠・分娩が可能であった回腸導管を造設された二分脊椎症の1例. *西日泌尿* **52**: 1462-1465, 1990
 - 14) 吉井将人, 安川元信, 高橋省二, ほか: 先天性二分脊椎症例における妊娠・分娩の経験. *日泌尿会誌* **82**: 1538, 1991
 - 15) Kreder KJ, Webster GD and Oakes WJ: Augmentation cystoplasty complicated by postoperative ventriculoperitoneal shunt infection. *J Urol* **144**: 955-956, 1990
 - 16) Mevorach RA, Hulbert WC, Merguerian PA, et al.: Perforation and intravesical erosion of a ventriculoperitoneal shunt in a child with an augmentation cystoplasty. *J Urol* **147**: 433-434, 1992
 - 17) Lober J: Systematic ventriculographic studies in infants born with meningomyelocele and encephalocele. *Arch Dis Child* **36**: 381-389, 1961
 - 18) Yamada H, Nakamura S, Tanaka Y, et al.: Ventriculography and cisternography with water-soluble contrast media in infants with myelomeningocele. *Radiology* **143**: 75-83, 1982

(Received on January 20, 1993)
(Accepted on April 6, 1993)