

原因不明の女子尿道狭窄症に対し、虫垂を用いた 自己導尿型尿路変向を施行した1例

砂田 拓郎*, 上戸 賢**, 濱田 彬弘***, 加藤 敬司
植月 祐次, 川西 博晃, 奥村 和弘
天理よろづ相談所病院泌尿器科

URINARY DIVERSION USING AN APPENDICOVESICOSTOMY FOR IDIOPATHIC URETHRAL STRICTURE: A CASE REPORT

Takuro SUNADA, Satoshi KAMIDO, Akihiro HAMADA, Keiji KATO,
Hirosugu UETSUKI, Hiroaki KAWANISHI and Kazuhiro OKUMURA
The Department of Urology, Tenri Hospital

A 55-year-old woman was referred to our hospital with dysuria. We were unable to catheterize her using a nelaton catheter because of a urethral stricture, resulting in a large residual urine volume on ultrasonography. The circumference of the periurethral tissue was also thickened and the entire length of the urethra was stenotic, without apparent cause, on magnetic resonance imaging. Biopsy did not reveal malignancy. The pathological diagnosis of the periurethral tissue was simply fibrosis, and there was no definitive diagnosis. We decided to place a guidewire to attempt transurethral dilation, but it was unsuccessful because of the urethral stricture. The patient then underwent Mitrofanoff appendicovesicostomy. Three years later, there was no difficulty with catheterization through the appendix, despite her suffering from a bladder stone during the interim. We consider the Mitrofanoff appendicovesicostomy a good substitute technique for catheterization in patients with very severe urethral stricture.

(Hinyokika Kiyo 62 : 479-482, 2016 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_62_9_479)

Key words : Urethral stricture, Appendix, Urinary diversion

緒 言

女性の尿道狭窄は稀な病態であり、尿道拡張術や尿道形成術が標準的治療として施行されているが、広範囲の高度な尿道狭窄に対しては定まった治療がないのが現状である。

今回われわれは女性の原因不明の尿道狭窄に対して虫垂を用いた自己導尿型の尿路変向を行った1例を経験したので報告する。

症 例

患者：55歳，女性
主 訴：排尿困難
既往歴：特記事項なし
家族歴：特記事項なし
外陰部外傷や手術の既往：なし
妊娠出産歴：30歳時に経膈分娩で第1子を出産
仕 事：事務職
月経歴：整 51歳で閉経

子供の頃の排尿習慣：特記事項なし

現病歴：10年前から排尿困難を自覚していたが、2010年11月頃より症状が徐々に増悪したため、2011年3月に近医を受診した。CTで多量の残尿を認め、導尿を試みるも不可能であったため当科紹介受診となった。視診上外陰部・外尿道口には異常は認めなかったが、膈内診により尿道周囲に弾性硬であり可動性のない母指頭大の腫瘤を触知した。

導尿を試みたが、外尿道口よりネラトンカテーテルが挿入できなかった。

初診時現症：身長 163 cm, 体重 48 kg

各種検査所見：

血液一般・生化学検査：異常所見なし。

腫瘍マーカー：CEA, CA19-9, SCC, NSE いずれも正常範囲

尿細胞診：Class II, 尿定性および尿沈渣に異常所見なし。

尿流測定：Voided volume 86 ml, Qmax 2.0 ml/sec, Qave 0.9 ml/sec, voiding time 90 s, 残尿（腹部超音波検査上）500 ml

経 過：造影 MRI 検査を施行したところ、尿道周囲に T1W1 で低信号, T2W1 で膈壁膀胱壁と等信号の、間質成分を多く含むと思われる腫瘤様病変を認め

* 現：京都市立病院泌尿器科

** 現：市立豊中病院泌尿器科

*** 現：天津市民病院泌尿器科

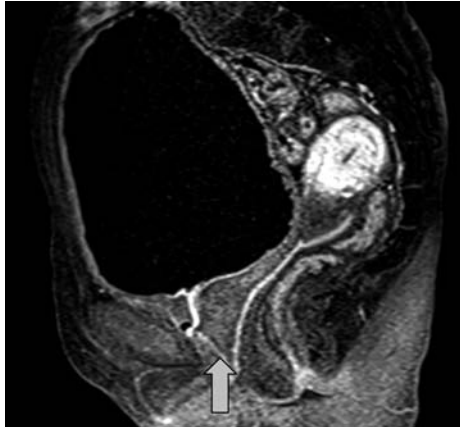


Fig. 1. MRI revealed urethral stricture and periurethral mass.

た。尿道周囲は全周性に肥厚しており、尿道は後壁の肥厚により、くの字型に屈曲していた (Fig. 1)。

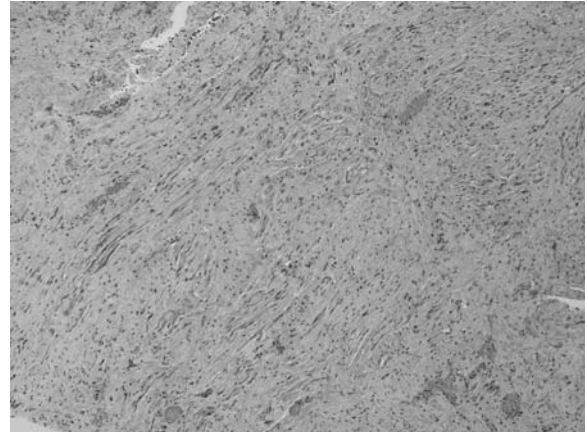
また尿道中央部で 15×6 mm ほどの憩室様構造が認められた。高度の排尿障害を認めるため、膀胱瘻を造設した。

その後精査のために、腰椎麻酔下に尿道造影、内視鏡検査および経膣的腫瘍生検を施行した。外尿道口から 5 Fr スtent を挿入し造影すると、外尿道口から約 1 cm のところで憩室様構造が確認されたがこれより近位の尿道は描出されなかった (Fig. 2)。

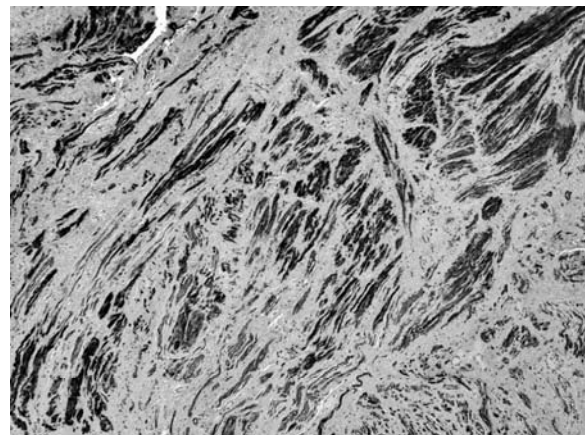
内視鏡検査では先端外径 8.5 Fr の軟性鏡がまったく外尿道口に挿入できなかった。そこで膀胱瘻より順行性に観察したが、内尿道口と思われる瘢痕を認めるものの、同部位から尿道へのガイドワイヤーは挿入できなかった。生検組織は、紡錘形細胞と膠原線維成分が混在した組織で、リンパ球、形質細胞の浸潤は目立たなかった。紡錘形細胞は α アクチン、デスミン染色が陽性であり、尿道由来の平滑筋と考えられた (Fig. 3)。



Fig. 2. Urethrography showed structure like diverticulum and proximal urethra was not visualized.



×40 HE stain



×40 α -actin (+)

Fig. 3. Pathology of urethral biopsy HE stain and α -actin stain: no malignancy.

IgG4 関連疾患も疑い染色を行ったが、形質細胞の浸潤はほとんどなく染色も陰性であった。尿道周囲組織の fibrosis という病理結果であった。尿道狭窄を引き起こす既往もなく原因不明の尿道狭窄症と診断した。

後腹膜線維症に類似した病態と考え、プレドニゾロン 20 mg/day 投与を 3 カ月行ったが、画像上腫瘍の大きさは変わらず、治療に反応を認めなかったため投与を漸減し中止した。最終的に自排尿がまったくできない状態となり、定期的な膀胱瘻交換が必要となった。

全長にわたる狭窄があり、またガイドワイヤーによる内腔の確保さえもできなかったことから、経尿道的拡張術や尿道形成術は不可能と判断した。

2012年2月、虫垂を利用した自己導尿型の尿路変向術を行った。虫垂間膜の血流を十分保持したまま有茎性に虫垂を遊離した。屈曲していた盲端側を切除すると約 5 cm の遊離虫垂となった。盲端側は粘膜下トンネル法にて膀胱と吻合し、盲腸側は右下腹壁を貫いてストーマを作製した。各段階にてネラトンカテーテルがスムーズに通過することを確認し、最終的に 14 Fr

カテーテルを留置して終了とした。

周術期合併症は認めず、術後2週でカテーテルを抜去した後は、導尿により完全禁制が保たれている。

経過中に膀胱結石を認め、内視鏡的治療を要したが、それ以外には大きな合併症はなく現在まで3年間経過している。

考 察

女性の尿道狭窄は、比較的稀な病態である。Groutzらの報告によると、女性の尿道狭窄の多くはfemale LUTS、尿閉、反復する尿路感染などを契機に発見され、排尿障害を呈する症例のうち、4~18%を占めるが、その原因として炎症、外傷、外科手術などがあげられる¹⁾。一方で、原因不明の特発性が半数を占めるといった報告もみられる¹⁻³⁾。本症例は、高度の尿道狭窄を呈していたが、生検組織からは確定診断にいたらず、原因を同定することはできなかった。本症例は閉経後の女性であり、エストロゲン低下に伴い尿道粘膜の萎縮が起こるが、本症例のような全周性の狭窄はわれわれが検索した限り認められなかった。また、本症例では尿道憩室を伴っており、憩室の成因として分娩時外傷、感染、尿道への機械的操作や尿道結石などが考えられるが、いずれの既往もなく、尿道憩室の存在による慢性炎症が周囲の線維化を引き起こした可能性もあるが、われわれが検索した限りではそのような報告はみられなかった。

また、われわれが調べた限り、同様の画像所見を呈した症例は見られなかった。

女性の尿道狭窄には定まった診断基準や定義はなく、過去の報告では、14~20 Frの尿道カテーテルが挿入できないことや、尿道造影による狭窄部位の同定によって診断されることが多いとされる。それに加えて、膀胱尿道鏡検査、尿流動態検査や尿流量測定、MRIや膀胱尿道造影などを行い総合的に診断されている⁴⁻⁶⁾。

治療としては手術療法が中心であり、尿道内腔が確保されている場合には、主に経尿道的尿道拡張術か尿道形成術が行われることが多い。経尿道的拡張術を行い、十分に拡張した後は、術後再狭窄予防のために1日1回の間欠的自己導尿による自己ブジーを行うことにより、約50%の成功率が得られている^{7,8)}。

尿道形成術については、陰粘膜や陰唇、口腔粘膜を用いた再建が行われており、成功率が高く合併症も少ないとされているが^{1,9,10)}、外尿道括約筋より遠位の狭窄症例が対象であり、本症例のような広範囲の狭窄で行われた報告はみられなかった⁴⁾。

本症例においては、経尿道的尿道拡張、尿道形成術などが不可能であったことから、尿路変向を行う方針とした。膀胱機能には問題なく、虫垂を導尿のための

輸出脚として利用するMitrofanoff法を行った。

本症例は、外傷歴や手術歴もなく、出産の経過についても特に問題はなかった。排尿障害の自覚はあったが、尿路感染の反復のエピソードもなく炎症の有無についてもはっきりしないことから狭窄の成因については明らかではない。生検組織からは尿道由来の平滑筋と考えられたことから、傍尿道平滑筋腫も鑑別疾患に挙げられたが、画像上周圍との境界が明瞭でなく傍尿道平滑筋腫としては典型的でないこと、好発年齢は50歳未満が中心であること¹¹⁾から可能性は低いと考えられた。

Mitrofanoff法は、歴史的に神経因性膀胱の小児に対して多く行われており¹²⁻¹⁴⁾、その術式は虫垂を遊離し、膀胱に粘膜下トンネルを約2cm確保し、吻合を行う。虫垂の蠕動により、導尿中の尿禁制が保持されるが、ストーマ狭窄の予防に周囲の組織をつけて虫垂を遊離し、術中に術者が適宜導尿を行い、導尿路が十分に確保されていることを確認する必要がある¹⁵⁾。回腸導管や皮膚瘻など他の尿路変向の術式と比して手術侵襲が少ない術式であるのが特徴である。術後合併症として、尿失禁や導尿困難、ストーマ狭窄、膀胱結石があるが、いずれも数%程度と報告されている^{13,14)}。長期成績についても、Fishwickらは11歳から23歳までの9例を8年間フォローし、問題なく導尿可能であったと報告している¹⁶⁾。虫垂が利用できない場合などには、腸管を脱管腔化して導尿路を作成するMonti法が選択されることもある。

Mitrofanoff法は成人においても、自己導尿が困難となった神経因性膀胱患者での報告や¹⁷⁾、尿道癌において尿道摘除のみを行い、膀胱温存を目的に施行された報告が見られる^{18,19)}。また高度の尿道機能障害(狭窄、失禁)の際にも適応となる。最近では腹腔鏡やロボット支援下に施行された報告²⁰⁾も見られており、手術成績や、術後成績も開腹手術の報告と遜色ないのであり、患者の満足度も高かったと報告されていることから今後選択肢の1つとなる可能性もある。

本症例においてはMitrofanoff法を選択し、術後導尿困難などの合併症はなく経過しているが、膀胱結石を認めており、今後さらに結石を認める可能性があることから、結石の再発がないか、導尿困難症状が認められていないかといったフォローアップが重要と考えられる。現時点ではストーマ狭窄は認めていないが、体型の影響を受けやすいため体型維持が重要と考えられ、食事管理なども重要である。

結 語

女性の高度尿道狭窄に対し、膀胱虫垂導管による尿路変向を行った1例を経験した。虫垂や腸管を用いる方法は禁制を保持できるためQOLへの影響が比較的

少ないと考えられる。一方で膀胱結石やストマ狭窄などの合併症があるため、経過観察が重要である。

本論文の要旨は第219回日本泌尿器科学会関西地方会で発表を行った。

文 献

- 1) Blaivas JG, Santos JA, Tsui JF, et al. : Management of urethral stricture in women. *J Urol* **188** : 1778-1782, 2012
- 2) Groutz A, Blaivas JG and Chaikin DC : Bladder outlet obstruction in women : definition and characteristics. *Neurourol Urodyn* **19** : 213-220, 2000
- 3) Kuo HC : Videourodynamic characteristics and lower urinary tract symptoms of female bladder outlet obstruction. *Urology* **66** : 1005-1009, 2005
- 4) Osman NI, Mangera A, Chapple CR, et al. : A systematic review of surgical techniques used in the treatment of female urethral stricture. *Eur Urol* **64** : 965-973, 2013
- 5) Santucci RA, Payne CK, Anger JT, et al. : Office dilation of the female urethra : a quality of care problem in the field of urology. *J Urol* **180** : 2068-2075, 2008
- 6) Gormley EA : Vaginal flap urethroplasty for female urethral stricture disease. *Neurourol Urodyn* **29** : S42-45, 2010
- 7) Smith AL, Ferlise VJ, Rovner ES, et al. : Female urethral strictures : successful management with long-term clean intermittent catheterization after urethral dilation. *BJU Int* **98** : 96-99, 2006
- 8) Romman AN, Alhalabi F, Zimmern PE, et al. : Distal intramural urethral pathology in women. *J Urol* **188** : 1218-1223, 2012
- 9) Simonato A, Varca V, Esposito M, et al. : Vaginal flap urethroplasty for wide female stricture disease. *J Urol* **184** : 1381-1385, 2010
- 10) Önel FF, Antar B, Köse O, et al. : Techniques and results of urethroplasty for female urethral strictures : our experience with 17 patients. *Urology* **77** : 1318-1324, 2011
- 11) 小森和彦, 佐藤元孝, 長谷部圭司, ほか : 女子傍尿道平滑筋腫の2例. *泌尿紀要* **51** : 125-128, 2005
- 12) Mitrofanoff P : Trans-appendicular continent cystostomy in the management of the neurogenic bladder. *Chir Pediatr* **21** : 297-305, 1980
- 13) Chulamorkodt NN, Estrada CR, Chaviano AH, et al. : Continent urinary diversion : 10-year experience of Shriners Hospitals for Children in Chicago. *J spinal Cord Med* **27** : S84-87, 2004
- 14) Duckett JW and Lofti AH : Appendicovesicostomy (and variations) in bladder reconstruction. *J Urol* **149** : 567-569, 1993
- 15) Wein AJ, Kavoussi LR, Novick AC, et al. : Campbell-Walsh Urology. Edited by Kavoussi LR, Novick AC, Partin AW, et al. Tenth ed, pp 3493-3495, ELSEVIER, USA, 2011
- 16) Fishwick JE, Gough DC, O'flynn KJ, et al. : The Mitrofanoff procedure : does it last ? *BJU Int* **85** : 496-497, 2000
- 17) 上田朋宏, 荒井陽一, 吉田 修 : 虫垂を利用した尿路変向術の2例. *泌尿紀要* **37** : 545-548, 1991
- 18) Kobayashi M, Nomura M, Yamada Y, et al. : Bladder-sparing surgery and continent urinary diversion using the appendix (Mitrofanoff procedure) for urethral cancer. *Int J Urol* **12** : 581-584, 2005
- 19) 龍治 修, 中澤速和, 東間 紘 : Mitrofanoff 法により膀胱温存を行った原発性女子尿道腫瘍の1例. *泌尿紀要* **43** : 425-427, 1997
- 20) Rey D, Helou E, Oderda M, et al. : Laparoscopic and robot-assisted continent urinary diversions (Mitrofanoff and Yang-Monti conduits) in a consecutive series of 15 adult patients : the Saint Augustin technique. *BJU Int* **112** : 953-958, 2013

(Received on January 13, 2016)

(Accepted on April 19, 2016)