

精管皮膚尿瘻症例

近畿大学医学部泌尿器科学教室（主任：栗田 孝教授）

辻 橋 宏 典
金 子 茂 男
郡 健 二 郎

URETHRO-VASO-CUTANEOUS FISTULA REPORT OF A CASE

Hironori TSUJHASHI, Shigeo KANEKO and Kenjiro KOHRI

From the Department of Urology, Kinki University School of Medicine

(Director: Prof. T. Kurita, M.D.)

A case of urethro-vaso-cutaneous fistula based on urethrovasal reflux was presented.

A 27-year-old man was admitted to the Kinki University Hospital on August 22, 1980. He had a history of urinary leakage from the right scrotum and scrotal swelling. This annoying leakage appeared when he bore to urinate. There was an orifice which was about 1 mm in diameter on right scrotum. A cord like structure was palpated between this fistula and the vas deferens.

A urethrocystogram demonstrated bilateral vesicoureteral reflux and right urethrovasal reflux. A fistelogram depicted right epididymis, vas deferens and posterior urethra. After his urination following bladder instillation of indigocarmine solution, endoscopy revealed a jet of blue dye from the ejaculatory duct. Young et al. first described on urethro-vaso-cutaneous fistula in 1926. Fourteen cases of urethro-vaso-cutaneous fistula including our case were reviewed and the pathophysiology of retrograde urination was discussed.

Key words: Urethro-vaso-cutaneous fistula, Urethrovasal reflux

緒 言

泌尿器科領域における尿瘻はそれほどめずらしい疾患ではないが、精管皮膚尿瘻に関する記載は非常に稀である。最近われわれは膀胱尿道機能障害に基づく尿道精管逆流現象により発生したと考えられる精管皮膚尿瘻の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：27歳男子。

初診：1980年8月20日。

主訴：右陰嚢部尿漏れ，陰嚢内容の腫張，不妊。家族歴：特記することはない。

既往歴：生下時，鎖肛にて人工肛門造設術を受け，11歳に人工肛門閉鎖術および肛門造設術を受けた。13歳で右停留睪丸に対して右睪丸固定術を施行されてい

るが，この時右陰嚢部瘻孔の存在を指摘されている。17歳の時，病名は不明であるが右足の腓移行術を施行されている。

現病歴：少年時より，強い尿意を催した時に排尿を自制していると右陰嚢部から尿が漏れるのに気付いていたが，その頻度は非常に少なかった。初診の約1年前より，仕事の関係で排尿を自制する機会が多く，その際右陰嚢部からの尿漏れにより下着が汚染する頻度も多くなった。1980年8月に右陰嚢内容の腫張および排尿困難を自覚し，約10日後に左陰嚢内容の腫張および熱発が出現したため当科に紹介された。

入院時現症：体格は中等度，栄養状態は良好であり，顔面，頸部，胸部および腹部には異常を認めなかった。外性器の発育は正常で，前立腺は正常に触知し，勃起は可能とのことであった。左陰嚢内容は約6×4.5 cmと腫大し，睪丸と副睪丸は一塊となり硬く，軽度の圧痛があった。右鼠径部には圧痛を伴った

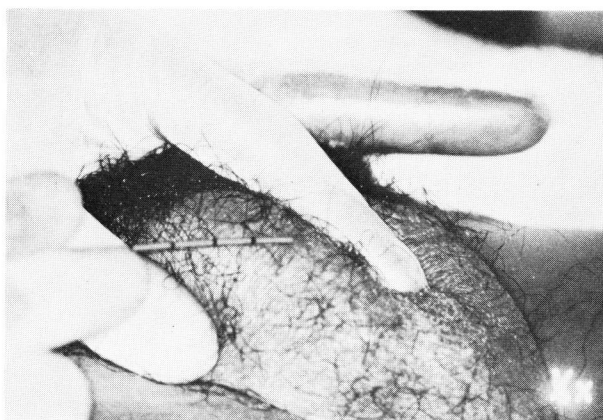


Fig. 1. An orifice of urinary fistula on right scrotum.

軽度の膨隆を認めた。また右副辜丸尾部に約 1.5×1 cm の硬結を触れ、右陰のう中央部に直径約 1 mm の瘻孔を認め、同部から精管につながる約 1 cm 長の索状の硬結を触知した (Fig. 1)。

入院時検査所見：血沈の促進、血膿尿、軽度の GPT の上昇を認める以外、特に異常は認めなかった (Table 1)。

レントゲン検査所見：膀胱造影では膀胱憩室と左の膀胱尿管逆流現象を認めた (Fig. 2-a)。この際患者は尿意を訴えたが、しばらく排尿を自制させた後に、排尿時膀胱尿道造影を行なうと、すでに造影剤は右精管へ逆流していたが、右精嚢は造影されなかった (Fig. 2-b)。この際の残尿は多く、排尿後、右陰嚢部瘻孔か

Table 1. 入院時検査所見

1) 末梢血液検査	血 糖 78mg/dl
赤血球 $380 \times 10^4 / \text{mm}^3$	コレステロール 114mg/dl
白血球 $6900 / \text{mm}^3$	トリクレサリト 55mg/dl
白血球分類 St 11%, Seg 34%, Lymph 46%, Mo 10%, Eos 1%	総ビリルビン 0.9mg/dl
血色素 13.1g/dl	直接ビリルビン 0.1mg/dl
ヘマトクリット 36.8%	GOT 36単位
血小板 $15.1 \times 10^4 / \text{mm}^3$	GPT 76単位
赤沈 (1時間) 130 mm	ALP 71単位
(2時間) 165 mm	LDH 179単位
2) 尿検査	CPK 39単位
蛋白 ±	血液尿酸濃度 14 mg/dl
糖 -	クレアチニン 0.9mg/dl
赤血球 10-15/視野	尿酸 6.5mg/dl
白血球 多数/視野	Na 138mEq/l
PH 5.5	K 4.2mEq/l
尿細菌培養 菌を認めず	Cl 104mEq/l
3) 血液生化学検査	P 3.1mg/dl
総蛋白 5.9g/dl	Ca 8.3mg/dl
A/G 1.2	4) ECG 異常なし
アルブミン 3.3g/dl	5) Chest x-p 異常なし

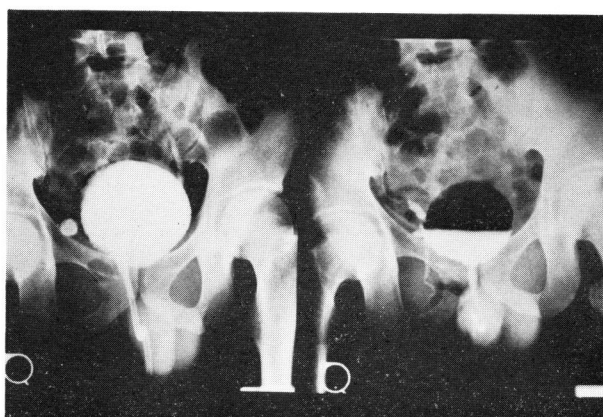


Fig. 2-a

Fig. 2-b

Fig. 2-a. Cystogram shows bladder diverticula and left vesico ureteral reflux.

Fig. 2-b. When he bore to urinate after cystogram, voiding cystourethrogram already demonstrates reflux into right vas deferens.

らの造影剤の漏出が確認された。排尿時膀胱尿道造影にひき続いて行なった排泄性腎盂造影では、上部尿路に異常は認めなかったが、右精管内に造影剤の残存を認めた (Fig. 3)。右陰嚢部からの瘻孔造影にては、精管、副睾丸、尿道および膀胱の一部が造影された (Fig. 4)。逆行性尿道膀胱造影では尿道精管逆流現象は認められなかった (Fig. 5-a)。しかし排尿を自制させると、両側の膀胱尿管逆流現象とともに尿道から右精管への逆流、および前立腺への溢流を認めた (Fig. 5-b)。

内視鏡検査所見：膀胱内へインジゴガルミンを注入

し、排尿後前立腺を経直腸的に圧迫すると、射精管口からのインジゴガルミンの排出を認め、尿道精管逆流現象の存在が確認された。また膀胱内には軽度の肉柱形成が見られたが、瘻孔は認められなかった。膀胱最大容量は 180 ml で、膀胱頸部および射精管口も開大していた。

排尿動態機能検査所見：温冷刺激に対する膀胱知覚および膀胱固有知覚は正常であったが球海綿体反射は亢進していた。尿流量率測定 (uroflowmetry) では最大尿流量率は 14 ml/sec であり、平均尿流量率は 7.5 ml/sec であった。膀胱内圧曲線は高緊張型で、排尿

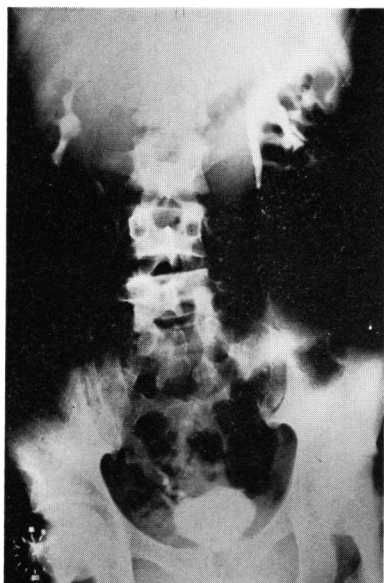


Fig. 3. Excretory urogram was performed just after voiding cystourethrogram. The urogram shows no abnormality of the upper urinary tract, but the remnant of contrast medium is indentified in right vas deferens.



Fig. 4. Fistelogram depicts right epididymis, vas deferens and posterior urethra.

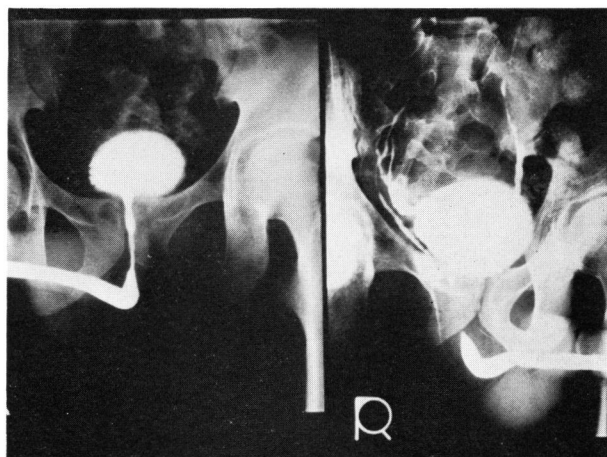


Fig. 5-a

Fig. 5-b

Fig. 5-a. Retrograde urethrocytogram: no demonstrable urethrodeferential reflux.

Fig. 5-b. When he bore to urinate, retrograde urethrocytogram reveals bilateral vesico ureteral reflux and right urethrovasal reflux.

反射の亢進 (detrusor hyperreflexia) を認め、利尿筋と外括約筋との協調 (detrusor-sphincter synergy) は良好であった (Fig. 6).

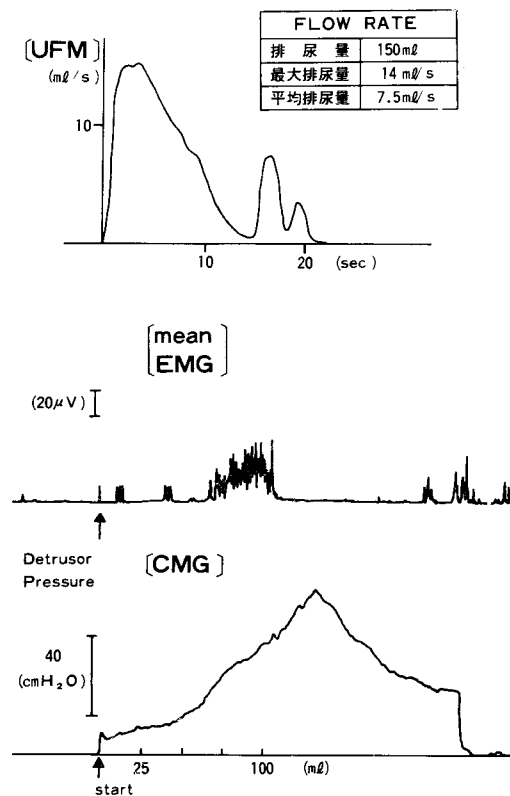


Fig. 6. Urodynamic examination:
above: Uroflowmetry.
below: Electromyogram and
cystometrogram

考 察

精管皮膚尿瘻に関する記載は、成書にもほとんど見あたらず、今回われわれの渉猟した範囲では、自験例を加え14例の報告があり、本邦においては、1964年原¹⁾が膀胱頸部強直症に続発した精管皮膚尿瘻を報告しているのみである。

精管皮膚尿瘻は尿道精管逆流現象に続発して発生することは諸家の一致した意見であるが、その発生機序に関しては、必ずしも明確な考案は十分であるとは思えないがわれわれは今回その原因を、精管異所開口、前立腺摘除術後、膀胱尿道機能障害、不明と4つに大きく分類してみた (Table 2)。

われわれの今回の症例は、他の症例と比較して排尿時には精管への逆流は認めず、排尿を自制した時のみ、逆流を認めることや、掛尿動態機能検査の結果か

Table 2. 精管皮膚尿瘻症例

I. 精管異所開口	——	Hawtrey 6)	1970
II. 前立腺摘除術後	——	Bessesen 7)	1932
		Hanley 17)	1945
		White 14)	1956
		Carlton 8)	1960
		Hoess 18)	1964
III. 膀胱尿道機能障害	——	原 1)	1964
		自験例	1980
IV. 不 明	——	Young	1926
		(副睾丸切除術後)	
		Atlas 11)	1935
		(膀胱頸部切除術後)	
		Meade 19)	1947
		(精管造口術後)	
		Savchenko	1956
		Cobb 12)	1966
		(辜丸切除術後)	
		Henriet 20)	1976

ら膀胱尿道機能障害、すなわち神経因性膀胱の関与が考えられる。

Koff²⁾ (1976) は器質的異常が存在せず、排尿時膀胱尿道造影でも尿道精管逆流現象が認められず、神経学的検査も正常な非特異性副辜丸炎の症例を検討し、下部尿路の機能的閉塞に基づいた尿道精管逆流現象の存在を示唆した。すなわち Koff は膀胱内圧と尿道外括約筋部の筋電図を測定し、無抑制性神経因性膀胱や膀胱過容量型を見出し、無抑制性神経因性膀胱では、膀胱の無抑制性収縮により膀胱頸部は開くが、反射的に尿道外括約筋部の収縮がおこり、利尿筋、外括約筋協調不全の状態となり、機能的閉塞に基づく、尿道精管逆流現象が発生すると説明している。また膀胱過容量型においても、膀胱過伸展の状態で膀胱内圧の上昇とともに、腹圧が加わるとやはり尿道外括約筋部の収縮がおこり、尿道精管逆流現象が生じるとも述べている。

本症例においては、膀胱内圧と肛門外括約筋部筋電図との同時測定では利尿筋は高緊張型を呈し、排尿反射の亢進を認め、denervation supersensitivity test (Lapides)³⁾ は陽性であった。しかし denervation supersensitivity test は炎症などにより偽陽性となる例があり⁴⁾、本症例においても膀胱内圧測定の結果から考え、偽陽性になったものと考ええる。また本症例においては利尿筋・外括約筋協調運動は正常で、随意に尿道外括約筋を収縮させることも可能であるが、いったん利尿筋の無抑制性収縮が生じた際に排尿を自制しようとすると、尿道外括約筋部で機能的閉塞の状態となるにもかかわらず膀胱頸部が開大し、利尿筋の収縮

が継続するため尿道精管逆流現象が発生すると考えられる。本症例におけるこのような排尿反射の亢進状態が生来の核上型損傷に基づくものか、幼少時の外科的手術などによる下部尿路もしくはその周囲の炎症のために後天性に生じたもの⁹⁾か決定することは困難であるが、鎖肛や下肢の奇型は前者による排尿機能障害が原因であることを示唆するものである。

過去に報告された他の機序の精管皮膚尿瘻症例を顧みると、その発生原因は前記のごとく、精管異所開口、前立腺摘除術後、不明の3つに基づく尿道精管逆流現象の結果発生したものであるとすることができる。Hawtrey⁹⁾(1970)は親子にわたって先天性射精管口の解剖的開口異常に基づく、尿道精管皮膚尿瘻の例を報告している。

Bessesen⁷⁻⁹⁾(1932)らは前立腺摘除術やTUR-Pの後に発症した例を報告し、たとえばTUR-P後、精丘より末梢に残存した前立腺は射精管に対して持続性の閉塞状態を生みだし尿の流動が変えられ、上昇する圧力のもとで射精管口は尿の逆流の入口となると述べている。Kiviat¹⁰⁾(1972)は尿管膀胱移行部と同様に射精管口にも解剖的に逆流防止機構が存在し、前立腺摘除術によりその機構が取り除かれ、尿道遠位部に閉塞のある時、尿道精管逆流現象が発症しうると説明し、またAtlas¹¹⁾(1935)は膀胱への外科処置後に精管に炎症が発生すると、精管壁は肥厚し痙攣性収縮におちいり、尿道遠位部の閉塞を伴った時、逆流が発生し尿道精管皮膚尿瘻が発生したと報告している。

以上述べたごとく尿道精管皮膚尿瘻は尿道精管逆流現象に基づく副睾丸炎に続発して生ずると考えられるが、それをうらづけるいくつかの報告がある¹²⁻¹⁵⁾。細菌は副睾丸へ尿道より逆行性に感染を起こすと考えられるが、しかしたとえ無菌尿であっても逆流現象が存在する時、非特異性副睾丸炎が発症しうると考えられている。Graves¹⁶⁾(1950)は実験的に精管内に無菌尿を注入し、非特異性副睾丸炎を発症させ、その化学的刺激により副睾丸炎が生じると述べている。いずれにしても瘻孔は副睾丸炎の発症の過程で、精管周囲の炎症が消退する過程で形成されたものと考えられる。

治療法としてはCobb¹²⁾(1966)は持続導尿のみにより瘻孔の閉鎖をみたと報告しており、またMegalli^{11,15)}(1972)らは精管切断術や精管結紮術などを施行して尿瘻の閉鎖に成功したと報告している。しかしわれわれは本症例に対し上記の方法はとらず、尿瘻はあくまで膀胱尿道の機能的障害に基づく続発性変化であると考え、利尿筋の過緊張性に対して副交感遮断剤、また膀胱頸部の収縮を生ぜしめるために α 受

容体刺激剤などを投与して外来にて現在経過観察中である。しかし現時点では必ずしも良好な結果は得られておらず、今後さらに検討を要するものと思われる。

結 語

27歳、男性で少年時より、排尿を自制した時発生する尿道精管皮膚尿瘻の1症例を経験した。排尿動態機能検査などにより、その原因として膀胱尿道機能障害に基づくと考えられる尿道精管逆流現象の存在が示唆されたので若干の文献の考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第93回日本泌尿器科学会関西地方会(1980年12月6日)において発表した。御指導、御校閲くださった恩師栗田 孝教授に深く感謝いたします。

文 献

- 1) 原 信二：小児にみられた精管、陰のう尿瘻の1例。日泌尿会誌 55: 936, 1964
- 2) Koff SA: Altered bladder function and non-specific epididymitis. J Urol 116: 589~592, 1976
- 3) Shlomo R, William EB: Neuromuscular dysfunction of the lower urinary tract. In Harrison JH, Gittes RF, Perlmutter AD, Stamey TA, Walsh PC: Campbell's Urology, 4th ed., Vol. II, p.1215~1254, WB Saunders Co., Philadelphia, 1979
- 4) Blaivas JG, Labib KB, Michalik SJ, Zayed AAH: Failure of bethanechol denervation supersensitivity as a diagnostic aid. J Urol 123: 199~201, 1980
- 5) Diokno AC, Koff SA, Bender LF: Periurethral striated muscle activity in neurogenic bladder dysfunction. J Urol 112: 743~749, 1974
- 6) Hawtrey CE: Case report of a congenital urethro-vaso-cutaneous fistula. J Urol 104: 555~556, 1970
- 7) Bessesen DH: An unusual complication following prostatectomy: Urinary fistula of the vas deferens. Urol and Cutan Rev 36: 432~433 1932
- 8) Carlton CE Jr, Leader AJ: The cystourethrographic demonstration of retrograde urinary flow in the vas deferens as a cause of epididymitis. J Urol 84: 123~125, 1960
- 9) Badenoch AW: Vaso-epididymal reflux syndrome. Proc Roy Soc Med 46: 847~849, 1953

- 10) Kiviat MD, Shurtleff D, Ansell JS: Urinary reflux via the vas deferens: Unusual cause of epididymitis in infancy. *J Pediatr* **80**: 476~479 1972
- 11) Atlas LN: An unusual type of urinary fistula: Report of case. *Urol and Cutan Rev* **39**: 627~629, 1935
- 12) Cobb OE, Lane FC, Anderson EE: Vaso-cutaneous fistula. *J Urol* **95**: 788~790, 1966
- 13) O'Connor VJ: Silver solution in the lumen of the vas after bladder instillation. *J Urol* **33**: 422~425, 1935
- 14) White EP, Berry NE: Urinary fistula of the vas deferens. *Can Med Assoc J* **75**: 301~302, 1956
- 15) Megalli M, Gursel E, Lattimer JK: Reflux of urine into ejaculatory ducts as a cause of recurring epididymitis in children. *J Urol* **108**: 978~979, 1972
- 16) Graves RS, Engel WJ: Experimental production of epididymitis with sterile urine: Clinical implications. *J Urol* **64**: 601~613, 1950
- 17) Hanley HG: Urinary fistula following scrotal vasectomy. *Br J Urol* **17**: 54~55, 1945
- 18) Hoess H: Harnfistelung aus dem Samenleiter. *Z Urol & Nephrol* **57**: 71~74, 1964
- 19) Meade HS: Urinary fistula following vasostomy. *Br J Urol* **19**: 35, 1947
- 20) Henriot R: Fistule urinaire scrotale par reflux urethro-deferentiel. *J Urol Néphrol* **82**: 523~524, 1976
- 21) Kreutzmann HAR: Studies of infections of the vas deferens. *J Urol* **39**: 123~127, 1938
- 22) Lapides J, Ajemian EP, Stewart BH, Breaky BA, Lichtwardt JR: Further observations on the kinetics of the urethrovesical sphincter. *J Urol* **84**: 86~94, 1960
- 23) 安本亮二・中西純三・岸本武利・前川正信・船井勝七・辻田正昭: 精管皮膚瘻. *日泌尿会誌* **70**: 1287~1291, 1979
- 24) 西田 亨・工藤哲男・富樫正樹・小柳知彦・森道夫: 乳児の非特異性副睾丸炎. *西日泌尿* **42**: 395~400, 1980

(1981年 4月 3日 受付)