

Youssef 症候群を呈した膀胱子宮瘻の 1 例

大年 太陽, 玉田 聡, 北本興市郎
桑原 伸介, 川嶋 秀紀, 仲谷 達也
大阪市立大学大学院医学研究科泌尿器病態学

VESICOUTERINE FISTULA-YOUSSEF SYNDROME: A CASE REPORT

Taiyo OTOSHI, Satoshi TAMADA, Koichiro KITAMOTO,
Nobuyuki KUWABARA, Hidenori KAWASHIMA and Tatsuya NAKATANI
The Department of Urology, Osaka City University Graduate School of Medicine

A 38-year-old woman was referred to our hospital with a chief complaint of cyclic hematuria and amenorrhea after Caesarean section. Magnetic resonance imaging showed vesicouterine fistula. The patient was treated with luteinizing hormone-releasing hormone analog to stop menstruation for six months. We performed transperitoneal closure of the vesicouterine fistula. Normal menstruation resumed after 4 months, and the symptoms disappeared. This case was considered Youssef syndrome (cyclic hematuria without vaginal amenorrhea or urinary incontinence). We discuss the cause of this syndrome.

(Hinyokika Kiyo 59 : 27-29, 2013)

Key words : Youssef syndrome, Vesicouterine fistula

緒 言

われわれは帝王切開術後に膀胱子宮瘻が出現し、臨床症状から Youssef 症候群と診断された症例を経験した。若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：38歳，女性

主訴：肉眼的血尿

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：2008年7月他院にて帝王切開術の際に膀胱損傷（詳細不明）あるも保存的に軽快した。その後、月経なく2011年1月頃より月経様下腹部痛と無症候性肉眼的血尿が出現したため前医を受診した。MRI、膀胱鏡にて膀胱子宮瘻と診断され、治療目的に当科紹介受診となった。

現症：身長 157 cm，体重 53 kg，心拍数 69回/分，血圧 115/63 mmHg。

検査所見：血算，一般生化学検査にて異常所見を認めず。止血機能にも異常を認めなかった。尿中白血球 20～29/HPF であった。

画像所見：膀胱鏡にて膀胱後壁に瘻孔を認め、その周囲に月経によると思われる炎症の波及が見られた (Fig. 1)。尿管口はその近傍に存在した。単純 MRI T2 強調画像矢状断にて膀胱後壁と子宮体部の間に瘻孔を認めた (Fig. 2)。

臨床経過：MRI より膀胱子宮瘻と診断したため子宮卵管造影や膀胱造影検査は追加しなかった。根治治

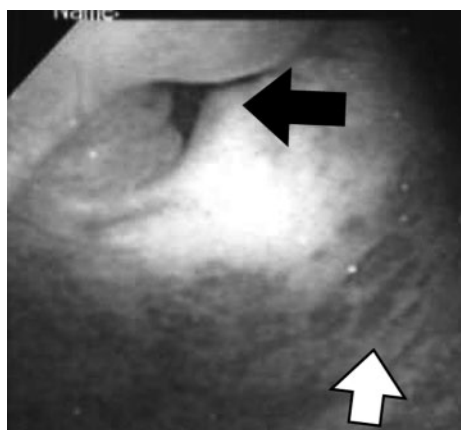


Fig. 1. Cystoscopy showed fistula of posterior wall of urinary bladder (black arrow) and inflammation of the mucous membrane (white arrow).

療には手術が必要と判断したが、患者が半年後の手術を希望したことからリュープロレリン酢酸塩を開始して無月経とした。6カ月後、全身麻酔下に経腹的膀胱子宮瘻閉鎖術を施行した。子宮を膀胱から剥離して1.0 cm 大の瘻孔を確認し (Fig. 3)，子宮は単純閉鎖した。瘻孔が尿管口近傍に存在したため、膀胱高位切開して両側尿管口から S～J 尿管カテーテルを挿入し周囲と軽度癒着した瘻孔周囲組織を十分に切除して2層に縫合した。間隙には大網を充填して終了した。術後14日目に膀胱造影にて明らかな造影剤の漏出のないことを確認して S～J 尿管カテーテルと尿道カテーテルを抜去した。術後4カ月目に正常月経が再開したが、

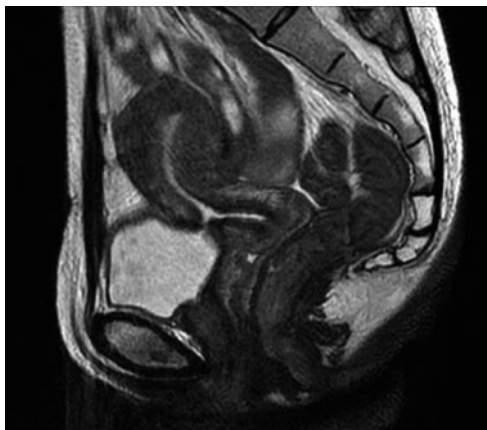


Fig. 2. Abdominal MRI (T2 weighted) showed vesicouterine fistula.

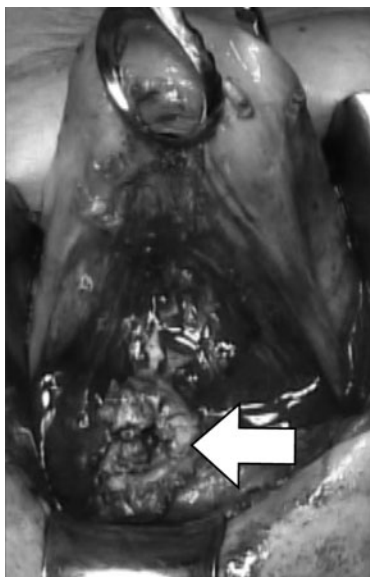


Fig. 3. Fistula of bladder (arrow).



Fig. 4. Vesicouterine fistula was closed after surgical repair. Greater omentum is filled (arrow) (T2 weighted MRI).

血尿は認めなかった。また単純 MRI にて瘻孔の閉鎖と充填された大網を確認した (Fig. 4)。

考 察

Youssef ら¹⁾は1957年に膀胱子宮瘻の症状の中で周期性血尿はあるが陰性尿失禁と経膈月経のない症例を Youssef 症候群と定義し、自験例もこれにあたる。診断、治療については一般的な膀胱子宮瘻と同様であるが、症状からは泌尿器科疾患との鑑別が必要となる。

本邦においては小林ら²⁾が6例報告しており、その後森下³⁾の報告を加えると本例は8例目にあたる。

Youssef 症候群を呈するには、瘻孔が子宮体部にあり、かつ子宮頸部が温存されていることが必要条件としてあげられる。さらに以下の通りに子宮内圧と膀胱内圧の関係性を考慮することで上記の症状が出現すると考えられている^{4,5)}。

月経期には子宮内圧が 130~160 cmH₂O となる。膀胱内圧は排尿時でも 50 cmH₂O 程度であるため、月経血が瘻孔を通して膀胱内に流入し月経の度に肉眼的血尿を引き起こす (Fig. 5a)。

次に月経間期には子宮内圧は 35~100 cmH₂O まで低下する。排尿時に膀胱内圧があがると、子宮内に尿

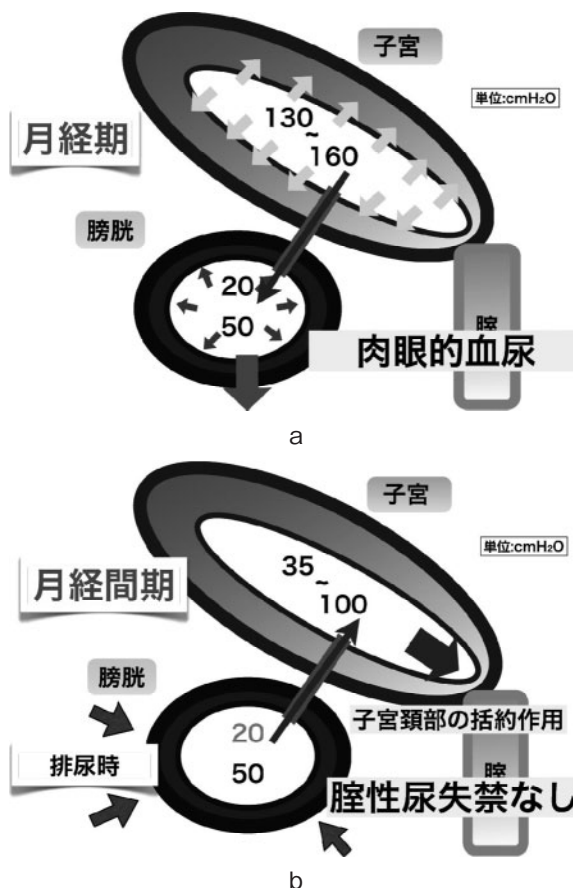


Fig. 5. The relation of the intrauterine pressure and intravesical pressure. (a) In a menstrual period. (b) In intermenstrual period.

が流入する。ここで重要なのが先ほど述べた子宮頸部が温存されていることである。つまり、子宮頸部の括約作用が温存されているために子宮内に尿が貯留しても陰性尿失禁は起こらないと考えられる (Fig. 5b)。子宮内に貯留した尿は、蓄尿期に膀胱内圧が下がった際に再度膀胱内に戻る。膀胱造影では瘻孔が描出されず、子宮卵管造影にて瘻孔を確認した森下の報告³⁾は、上記考察に矛盾しない。

一般的な膀胱子宮瘻は栗林ら⁶⁾が本邦における69例を集計しており、その後の寺内ら⁷⁾の報告を加えると自験例が71例目にあたる。

症状では陰性尿失禁が約80%と最も多く、次に周期性血尿、膀胱炎症状と続き、Youssef 症候群とは明らかに異なる。

診断のために過去の報告例では膀胱造影、子宮卵管造影が用いられているのに対し、自験例ではより侵襲の少ない MRI のみで診断することが可能であった。出産適齢期の若年女性に多い疾患であるため身体的、精神的負担の多い造影検査にかわり積極的に MRI を撮影すべきであろう。

膀胱子宮瘻の原因としては87%が産科的原因であり、中でも全体の54%が自験例と同様に帝王切開によるものである。その他少数であるが外科的要因、外傷性、またアミロイドーシスが原因と考えられる症例も報告されている⁸⁾。

治療としてほとんどの症例で経腹もしくは経膈的に瘻孔閉鎖術を施行されており、再発は報告されていない。より侵襲の少ない経尿道的粘膜凝固術を施行した症例⁹⁾では術後再発を認めており、治療として不十分と考えられる。本症例では瘻孔と尿管口が近く、また月経による膀胱粘膜の炎症も認められ膀胱を大きく切開する必要があったため、尿管ステントを留置し、術中の損傷予防と術後の創部安静を保持した。また患者が出産適齢期であることを考えると1期的に治療する必要性が高いため、大網充填を行い、有用であった。

手術療法以外では腎瘻と尿道カテーテル留置にて保存的に軽快した例¹⁰⁾や、自験例でも使用した LH-RH analog 投与のみにより改善した例¹¹⁾があり、外科的手術の待機期間中にこれらの治療を施行する意義はある。

最後に膀胱子宮瘻術後の妊孕性について、現在までに3例の出産が報告されており³⁾、自験例においても今後の出産は可能であると考ええる。

結 語

Youssef 症候群を呈した膀胱子宮瘻の1例を経験した。経腹的瘻孔閉鎖術を施行し、術後再発を認めていない。

文 献

- 1) Youssef AF: Menouria following lower segment cesarean section a syndrome. *AM J Obstet Gynecol* **73**: 759-767, 1957
- 2) 小林峰生, 小谷俊一, 近藤厚生: 膀胱子宮瘻の1例. *泌尿紀要* **31**: 1049-1052, 1985
- 3) 森下直由: 膀胱子宮瘻の1例. *西日泌尿* **55**: 1496-1498, 1993
- 4) Porcaro AB, Zicari M, Antonioli SZ, et al.: Vesicouterine fistulas following cesarean section. *Int Urol Nephrol* **34**: 335-344, 2002
- 5) Kihl B, Nilson AE and Pettersson S: Postcesarean vesico-uterine fistula. *Acta Obstet Gynecol Scand* **59**: 277-280, 1980
- 6) 栗林正人, 江川雅之, 高島 博, ほか: 膀胱子宮瘻の1例. *臨泌* **57**: 439-441, 2003
- 7) 寺内文人, 池田 仁, 小林 裕, ほか: 無治療にて20年経過した膀胱子宮瘻の1例. *泌尿器外科* **18**: 1263-1265, 2005
- 8) 増田宏昭, 古瀬 洋, 田中 彰, ほか: 続発性アミロイドーシスが原因と考えられる膀胱自然破裂・膀胱子宮瘻の1例. *西日泌尿* **57**: 280-283, 1995
- 9) 田中一志, 長久祐史, 吉村光司, ほか: 膀胱子宮瘻の1例. *泌尿紀要* **42**: 601-603, 1996
- 10) 藤川真二, 奥野利幸, 内田克典, ほか: 分娩後膀胱子宮瘻を来した1例. *泌尿器外科* **10**: 35-37, 1997
- 11) Yokoyama M, Arisawa C, Ando M: Successful management of vesicouterine fistula by luteinizing hormone-releasing hormone analog. *Int J Urol* **13**: 457-459, 2006

(Received on April 4, 2012)
(Accepted on August 3, 2012)