

剖検にて偶然発見された膀胱内に 突出した尿膜管嚢胞の1例

—病理学的検討および最近10年間の文献的考察—

東邦大学医学部第一病理学講座（主任：秋間道夫教授）

柳下 寿郎, 長山 正史, 張 澤安, 伊原 文恵
羽鳥 努, 野中 博子, 秋間 道夫

日本歯科大学歯学部病理学講座（主任：青葉孝昭教授）

柳 下 寿 郎

A CASE OF ASYMPTOMATIC URACHAL CYST IN AUTOPSY —HISTOPATHOLOGICAL STUDY OF URACHAL CYST AND REVIEW OF THE LITERATURE OF 99 CASES DURING A 10 YEAR PERIOD IN JAPAN—

Hisao YAGISHITA, Tadashi NAGAYAMA, Zhang ZEAN, Fumie IHARA,
Tsutomu HATORI, Hiroko NONAKA and Michio AKIMA

From the First Department of Pathology, Toho University School of Medicine

Hisao YAGISHITA

From the Department of Pathology, Nippon Dental University

Disorders of urachal remnants are common. While urachal cysts are usually asymptomatic, infection may mimic a variety of acute abdomen. Here we report a very rare case of urachal cyst that protruded in the urinary bladder cavity and among 99 accumulated cases, only 4 cases have been reported similar to this case characterized by intravesical development from 1990 to 1999.

An uninfected urachal cyst was found in a 79-year-old male who had died of bile duct carcinoma. The cyst showed ovoid protrusion into urinary bladder cavity from the dome (3.5×2.0×2.0 cm in size). Histopathologically, the cyst wall was thin and consisted of fibrous connective tissue with muscular tissue and peripheral nerve, and lined by cuboidal epithelium but no inflammatory cells could be seen.

Urachal cysts occur in both sexes are affected with equal frequency, and frequently occur in a younger population. In clinical symptoms the umbilical manifestations are predominant in patients younger than 30 years old, while the bladder manifestations are predominant in those older than 30.

(Acta Urol. Jpn. 47 : 849-852, 2001)

Key words : Urachus, Urachal cyst, Bile duct carcinoma, Autopsy

緒 言

臍部と膀胱間に位置する尿膜管嚢胞は比較的稀な先天性疾患と考えられるが、本邦で現在までに240余例の報告を認め、最近10年間で99例の報告があり、増加傾向を示している。その大多数は炎症性病変を伴う感染性あるいは化膿性尿膜管嚢胞である。これらの報告が増加した要因として画像検査の発達が寄与していると考えられる¹⁾。今回われわれは、発生部位がきわめて稀な膀胱腔内に突出する尿膜管嚢胞を有する剖検例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：79歳，男性

主訴：腹痛，食事摂取不良，体重減少

既往歴：特記すべき事項なし

臨床経過：1997年9月黄疸が出現し、精査のため当院第一外科に入院。下部胆管癌の診断で、10月22日に臍頭十二指腸切除が施行された。病理所見は中分化型腺癌 Bi Ab ra ba np lp 1.0×2.0 cm Hinf0 H0 Ginf0 Pancl Du0 PV0 A0 P0 N(－)であった。外来にて follow-up 中、1999年2月に CA125 が軽度上昇した。画像上明らかな転移や再発は認められなかった。1999年4月腹痛が出現し、食事摂取が不能となり、血圧低下し、るいそう、腸閉塞所見を認め入院となった。高栄養輸液および昇圧剤の使用を開始したが同日夜突然血圧低下、翌朝永眠された。

病理解剖学的所見：胃 十二指腸部付近は術後の線

維性癒着を示すも癌の再発はなかった。膀胱周囲および臍部周囲には索状物も認めず、異常所見は認められなかった。膀胱腔内に頂部より突出する $3.5 \times 2.0 \times 2.0$ cm 大の波動を触知する嚢胞が認められた (Fig. 1A)。嚢胞と膀胱粘膜の移行部には数条の梁状の粘膜を認めたが、膀胱粘膜、嚢胞表面粘膜には著変を認めなかった。嚢胞断面では壁は薄く、多房性 (Fig. 1B) で、内容物は淡黄色の漿液性成分を認めた。

病理組織学的には、嚢胞は正中膀胱壁の固有筋層内から生じ、嚢胞は数個の娘嚢胞を伴いながら筋層を分断し膀胱内腔に向かって突出していた (Fig. 2A)。嚢胞内面は1～2層性の円柱上皮で裏うちされ、PAS染色は一部で弱陽性反応を示し、腺管構造を形成する部も認められた (Fig. 2B)。免疫組織化学染色では、トロンボモジュリン、HBME-1、および BerEP4 染

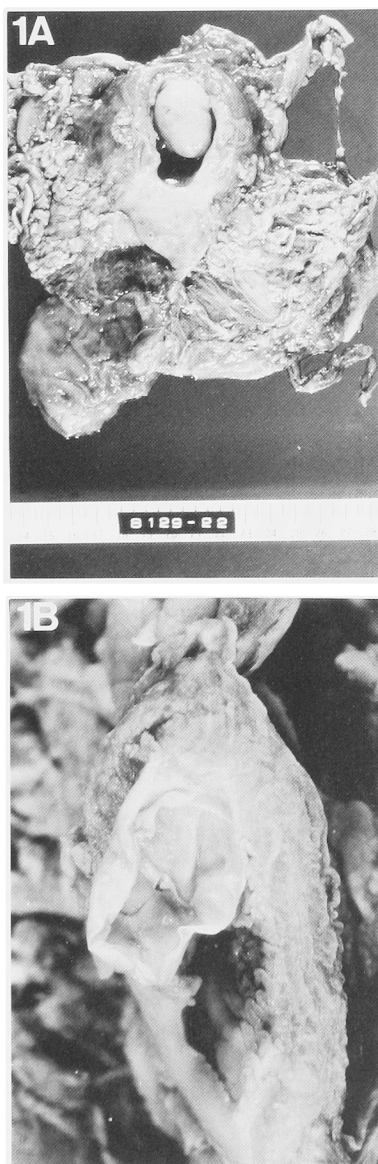


Fig. 1. (A) Gross appearance of urachal cyst of bladder. (B) The sagittal section of the multiple cysts in the bladder.

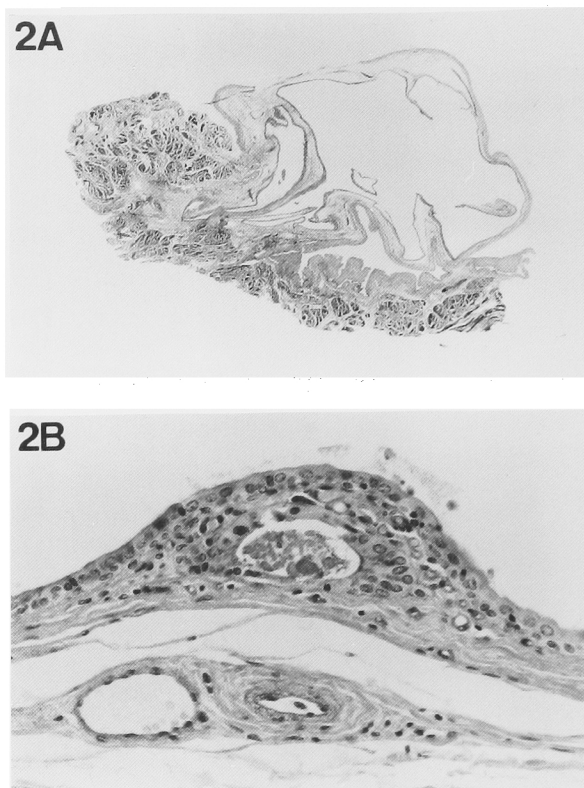


Fig. 2. (A) Microscopic image shows the bladder wall and the cyst wall (Masson trichrome stain, $\times 5$). (B) Note the epithelium cell with inclusion duct (PAS stain, $\times 100$).

色は陰性で、ケラチン染色は強陽性であった。嚢胞壁の上皮として移行上皮は認められなかった。

嚢胞壁は膠原線維より成り、神経線維や筋組織を認めたが、炎症細胞などの浸潤はなかった。

以上より、尿管嚢胞と診断された。

考 察

発生学的に尿管の形成は胎生16日目ころから開始され、胎生4～5カ月には尿管は収縮し、尿管管と呼ばれる太い線維性索状物となる。この尿管管は臍から膀胱頂部の間を繋ぐように存在する²⁾。この尿管管の発生およびその由来については尿管を起源とする説と膀胱を起源とする説の2つがあるが³⁾、一般的には後者が支持されている^{4,5)}。

解剖学的には成人健常者では、尿管管は腹直筋と腹膜の間、膀胱の上部に3～10 cmの長さで存在し、臍動脈由来の索状物である正中臍靱帯と連続している。尿管管の下端は膀胱筋層内に存在し、正常成人のうち2/3は閉鎖しているが、残りの1/3は膀胱内腔と顕微鏡的な交通をしているという⁶⁾。組織学的には尿管管の内腔は移行上皮およびその化生上皮で覆われ、中層は結合組織、外層は筋層で構成されている^{3,5,6)}。

尿管嚢胞は尿管管異常の1つで、一般的に尿管管の剝離上皮塊の変性⁷⁾あるいは何らかの原因で分泌物

が貯留し嚢胞を形成したもの⁸⁾で、臍および膀胱との間に一次的な肉眼的交通を認めないものとされ、この病態の発生頻度は5,000~8,000人に1人とされている³⁾。この嚢胞に感染が合併すると、下腹部痛や発熱、腫瘤触知、さらに抵抗減弱部位である臍や膀胱に破れ、臍からの排膿や膀胱炎症状を呈し発見される。嚢胞が小さく合併症のない場合には、臨床的に無症状で治療の対象とはならない。

われわれの検索では、自験例を除き、本邦において最近10年間（1990~1999年）に尿膜管嚢胞あるいは尿膜管嚢腫と報告された症例は99例であった。

年齢分布はそれ以前の報告^{3,8~11)}と同様で、30歳未満が47例、30歳以上が53例（0~79歳、中央値33.4歳）とほぼ同数であった（Table 1）。男女比は30歳未満群ではおおそ同様であったが（1.1:1）、30歳以上群では女性にやや多い傾向（0.7:1）を示し、全体では男:女=0.9:1で、以前の報告^{8,9,12)}とほぼ一致していた。

症状は（a）腹痛、（b）腹部腫瘤、（c）泌尿器症状、（d）臍部症状、（e）発熱に分類できた。腹痛は両群でそれぞれ47%、53%であった。臍症状は30歳未満群では40%、30歳以上群では11%と前者に高かった。一方泌尿器症状では30歳未満群では26%で、30歳以上群では49%と後者に高かった。若年層では臍と尿膜管嚢胞

の解剖学的交通の可能性に起因していると思われる。成人では嚢胞腔と膀胱との交通はごく少数例に止まったが、尿膜管と膀胱との間に顕微鏡的交通が存在することから⁵⁾、泌尿器症状との関連は否定しがたい。このような臨床所見および解剖学的、組織学的な所見を考慮して、尿膜管嚢胞の発生機序について考えると、尿膜管遺残が増殖性変化と変性を起し嚢胞が形成される場合（発育性嚢胞）と、尿膜管に感染が合併して生じる場合があり、多くの報告例は後者に属する³⁾。事実、感染を認める尿膜管嚢胞は1982~1991年の10年間の報告例中83%に認められ⁸⁾、今回のわれわれの検索でも100例中83例と同様の結果が得られている。この感染経路としては、下腹部手術が尿管膜を損傷し、それが感染の温床と指摘する報告が注目を浴びている^{8,15,16)}。しかし、今回の検索では、感染がみられた83症例中、下腹部の手術既往があったのは27症例（30歳以上群で42例中17例）にすぎなかった。したがって手術そのものが原因とは考え得ず、臨床症状などを加味して臍部からの下行性、あるいは膀胱からの上行性の感染が主体をなすのではないかと考える方が妥当である。一方、自験例を含めて数症例ではあるが、非感染性の嚢胞が存在することから発育性嚢胞も存在することは明らかである。

尿膜管異常の発生学的な分類としては辻の分類¹⁶⁾が多く用いられ、解剖形態学的な分類では、Blichert-Toft らの分類¹⁶⁾、MacNeily らの分類¹⁷⁾などがある。自験例では嚢胞の発生部位に特徴があったので Blichert-Toft らの分類を用いて検討をした。Blichert-Toft らは尿膜管の異常を Fig. 3 に示したように5型（Fig. 3A~3E）に分類しており、自験例は臍および膀胱と交通のない嚢胞であったので Fig. 3D の urachal cyst に相当する。しかし、尿膜管嚢胞は通常臍部と膀胱の間に形成されるが、自験例では膀胱頂部の壁から膀胱内腔に突出するように嚢胞が膀胱内に存在していた点は発生部位的にはきわめて稀な症例と考えられる（Fig. 3F）。過去の報告においてこれに類似した報告は少なく4症例をみるのみであった^{9,11,12,18)}。1症例が男児で、残りの症例は女性であった。そのうち1例では膀胱との交通が確認され、他の1例では尿膜管嚢胞に尿膜管瘻を伴っていた。各症例とも肉眼的血尿、下腹部痛、排尿時痛を主訴として来院しており、4症例とも嚢胞壁に炎症細胞の浸潤を認めていた。これらの報告では嚢胞の発生機序について明確にされていない。自験例では尿膜管上皮の端部が膀胱壁の筋層内に存在し、この部の上皮が何らかの刺激により筋層内に増生し、腹腔側ではなく膀胱内腔に向かって嚢胞を形成したもので尿膜管嚢胞の一亜型と考えられる。今回の文献的な検討では、尿膜管嚢胞として報告されているにもかかわらず、全体の約3

Table 1. Clinical and pathological findings of urachal cysts reported in Japan

	(単位: 例数)	
	0~29歳	30~79歳
症例数	47	53
主訴		
腹痛	24	25
腹部腫瘤	0	10
泌尿器症状	12	26
臍症状	19	6
発熱	15	19
交通性		
臍との交通		
有	17	4
無	1	3
不明	29	46
膀胱と交通		
有	2	5
無	11	11
不明	34	37
嚢胞裏装上皮		
有	12	14
移行上皮	3	4
移行上皮+他の上皮	2	2
他の上皮	7	5
異型上皮	0	3
無	35	39

主訴の内容には重複例あり。

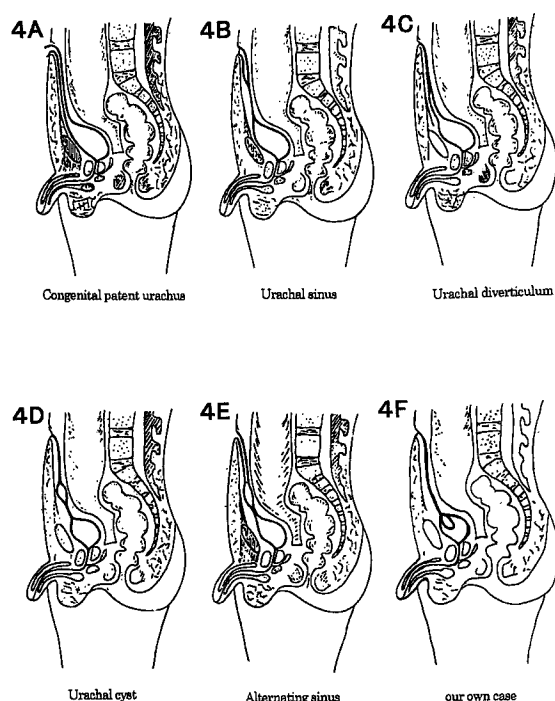


Fig. 3. Classification of congenital diseases in urachus (Modified from the illustrations by Blichert-Toft et al.).

割に臍あるいは膀胱との交通を認め、そのうちの数例に関しては肉眼的にも明らかな交通を認めていた。このような症例は上記の分類にしたがい、他の尿膜管異常に分類されるべきものである。

嚢胞壁の内側が上皮により裏うちされていたものが26%で、多くの症例では上皮を欠いていた。上皮がみられたものでは移行上皮あるいは移行上皮とその他の上皮が混在して認められたものが42%であった。尿膜管嚢胞の上皮は、尿膜管の膀胱起源説により移行上皮が期待されるが、自験例のように円柱上皮や立方上皮を呈したものも多かった。さらに粘液染色陽性の腺上皮が自験例でも認められたが、内胚葉性の後腸付近に尿膜管が由来していることからこのような上皮形態をとっても矛盾はしない³⁾

結 語

剖検時に偶然に発見された79歳男性の非感染性尿膜管嚢胞の1例について報告した。

通常の尿膜管の先天異常として5つの型が知られているが、自験例は発生部位的にはこの5つのどの型にも属さず、嚢胞は膀胱頂部より発生し膀胱内に突出していた。しかし、嚢胞壁と臍ならびに膀胱との交通は認められず、尿膜管嚢胞の一亜型と考えた。過去に4例の同様の報告があり、きわめて稀な症例であった。

文 献

1) 宗像良和, 富安克郎, 松岡 啓, ほか: 化膿性尿

- 膜管嚢胞の1例. 西日泌尿 59: 206-208, 1997
- 2) Moore K and Persaud TVN: 尿生殖器系. 人体発生学. Moore K, 星野一正 (訳). 第4版, pp 264-300. 医歯薬出版, 東京, 1997
- 3) 松岡 啓, 野田進士, 山口和彦, ほか: 化膿性尿膜管嚢胞の1例. 泌尿紀要 25: 825-831, 1979
- 4) 太田昌一郎, 布施秀樹, 永川 修, ほか: 尿膜管嚢胞の臨床的検討. 泌尿器外科 8: 737-740, 1995
- 5) 鎌崎穂高, 竹内 亮, 藤原正貴, ほか: 小児急性腹症としての化膿性尿膜管嚢胞の2例. 函館医誌 16: 76-79, 1992
- 6) 加藤賢朗, 寺師恵子, 早乙女智子, ほか: 感染性尿膜管嚢腫の1例. 産と婦 59: 108-112, 1992
- 7) Begg RC: The urachus: its anatomy, histology and development. J Anat 64: 170-184, 1930
- 8) 勝木茂美, 深町信一, 小林 肇, ほか: Meckel憩室を合併した化膿性尿膜管嚢胞の1例; 過去10年間の本邦報告112例についての検討. 日臨外医会誌 52: 1885-1892, 1991
- 9) 菅野貴行, 原田 浩, 竹内一郎, ほか: 化膿性尿膜管嚢胞の1例. 釧路病医誌 2: 110-114, 1990
- 10) 吉岡 優, 荻野敏弘, 島田憲次, ほか: 小児感染性尿膜管嚢胞の1例. 泌尿紀要 37: 183-185, 1991
- 11) 菊地悦啓, 入澤俊氏, 入澤千晶, ほか: 外尿道口より突出した尿膜管嚢腫の1例. 泌尿紀要 35: 1777-1780, 1989
- 12) 横山光彦, 牧 佳男, 小林達則: 化膿性尿膜管嚢胞の2例. 西日泌尿 55: 220-224, 1993
- 13) 西村 理, 柏原貞夫, 松末 智: 化膿性尿膜管嚢胞腫—12例の検討—. 日臨外医会誌 45: 194-198, 1983
- 14) Blichert-Toft M, Koch F and Nielsen OV: Anatomic variants of urachus related to clinical appearance and surgical treatment of urachal lesion. Surg Gynecol Obstet 137: 51-54, 1973
- 15) 辻 一郎: 尿管膜の先天性異常. 小児泌尿器科の臨床. 辻 一郎編. 第2版, pp 54-60, 金原出版, 東京, 1976
- 16) Blichert-Toft M and Nielsen OV: Diseases of the urachus simulating intra-abdominal disorders. Am J Surg 12: 123-128, 1971
- 17) MacNeily AE, Kroleit N, Kiruluta HG, et al.: Urachal abscesses: protean manifestations, their recognition, and management. Urology 40: 530-535, 1992
- 18) 二方律治, 今尾貞夫, 中村 陽: 尿膜管嚢を合併した尿膜管嚢胞の1例. 日臨外医会誌 57: 3067-3068, 1996
- 19) 佐藤大祐, 宮下由紀恵, 日村 勲, ほか: 尿膜管嚢の1例と本邦317例の文献的考察. 東邦医会誌 43: 387-392, 1996

(Received on May 2, 2001)
(Accepted on July 7, 2001)