

膀胱瘻を形成した卵巣類皮嚢腫の1例

西窪病院泌尿器科 (院長: 長倉和彦)

田畑 健一, 長倉 和彦

平野クリニック (院長: 平野 功)

平 野 功

北里大学医学部泌尿器科 (主任: 馬場志郎教授)

馬 場 志 郎

A CASE OF FISTULA BETWEEN THE URINARY BLADDER
AND AN OVARIAN DERMOID CYST

Ken-ichi TABATA and Kazuhiko NAGAKURA

From the Department of Urology, Nishikubo Hospital

Isao HIRANO

From Hirano Clinic

Shiro BABA

From the Department of Urology, Kitasato University

A 20-year-old woman was referred to our hospital for further evaluation on persistent pyuria. Physical examination showed a tender solid suprapubic mass. Computed tomography showed a right ovarian multilocular cystic tumor just above the urinary bladder. Cystoscopy showed pus leakage from an orifice in a hemisphere protrusion of the bladder wall. A small catheter could be inserted into the orifice. It revealed a fistula 4 cm in length between the right ovarian tumor and the vesical cavity. The tumor and the adjacent thickened bladder wall with an abscess and fistula were resected en bloc. Also a small left ovarian cyst was enucleated. Histopathological examination showed bilateral ovarian dermoid cysts, abscess formation, and marked inflammatory change around the fistula in the vesical wall. The fistula was thought to be the consequence of infection of the ovarian cyst.

(Acta Urol. Jpn. 50: 219-221, 2004)

Key words: Fistula, Ovarian dermoid cyst, Urinary bladder

緒 言

今回われわれは、卵巣と膀胱に瘻孔を形成し、卵巣、付属器切除、膀胱部分切除により外科的に治癒した卵巣類皮嚢腫の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

患者: 20歳, 女性
主訴: 排尿時痛, 尿混濁
家族歴: 特記すべき事項なし
既往歴: 虫垂炎 (15歳時に手術), 妊娠歴なし, STD なし
現病歴: 1997年5月より排尿時痛, 尿混濁および下腹部痛を認め近医を受診した。膀胱炎の診断にて抗生剤投与され, 一時的に改善を認めたが早期の再発を繰り返した。同年7月以降, 膿尿が持続し尿培養にてサ

ルモネラ属が検出され同年9月9日当科へ紹介された。CT検査を施行したところ膀胱の上方に卵巣腫瘍を認め精査加療目的で同年9月13日入院となった。

入院時理学所見: 身長 159 cm, 体重 48 kg, 血圧 88/60 mmHg

腹部は平坦かつ軟で恥骨上部に圧痛を認めた。膈内双手診にて膀胱頂部に小鶏卵大の圧痛を伴う腫瘍を認め, 子宮はやや後方に位置していた。

入院時検査所見: 血液検査; 末梢血, 生化学検査とも異常を認めなかった。また卵巣腫瘍の腫瘍マーカーとされている CA19-9, HCG などとも異常を認めなかった。尿所見; 色調混濁, RBC 10~20/HPF, WBC >100/HPF, 円柱 (-); 尿培養; 陰性, 尿細胞診; clsass I

画像所見: 腹部超音波検査所見; 膀胱頂部に腫瘤性病変を認め, その上方に一部が高エコー領域となる径約 7 cm の多房性腫瘍を認めた。膀胱鏡所見; 膀胱頂

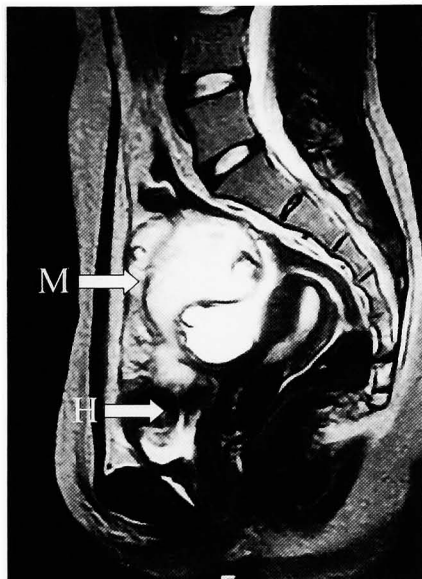


Fig. 1. Gd-enhanced T2-weighted magnetic resonance imaging showed high intensity area (H) in the thick bladder wall and there is a multilocular high intensity mass (M) above the bladder.

部に粘膜下腫瘍性病変認め、その中央に陥凹性病変を認めた。静脈性腎盂造影；上部尿路に異常所見はなく、膀胱の上方からの圧迫像を認めるのみであった。CT；膀胱頂部で壁の著明な肥厚を認め、その上方には一部に low density area を含む右卵巢多房性腫瘍を認めた。左卵巢にも 1 cm 大の同様の所見を認めた。MRI；T1 強調像では全体が low intensity で一部に脂肪とおもわれる high intensity area を有する卵巢腫瘍像を認めた。T2 強調像では肥厚した膀胱壁内に瘻孔を疑わせる high intensity area を認めた (Fig. 1)。注腸造影；異常所見は認めなかった。

以上より充実性成分を含んだ多房性腫瘍であり悪性腫瘍も否定できない所見であったが、若年女性であり妊孕性も考慮し、片側の卵巢、付属器切除および対側の核出術を行い、病理結果で悪性と診断された場合に根治的な再手術を行う予定とし、同年 9 月 18 日全身麻酔下に瘻孔造影および手術を行った。

術中造影所見：全身麻酔下。碎石位にて膀胱鏡を行い、膀胱頂部の陥凹より膿の排出を確認した。同部に 5 Fr カテーテルを挿入し、瘻孔造影を行った。カテーテルは 10 cm 以上挿入可能で、造影にて膀胱から約 4 cm の瘻孔を通じて上方の腫瘍まで造影された。

手術所見：下腹部、横切開にて膀胱前腔に至り、膀胱頂部が腫瘤状に肥厚しているのを確認後、腹膜を開いた。右卵巢は直径 9 cm 大の嚢胞状腫瘍を伴い、膀胱上部、子宮体部前面に位置していた。右卵巢腫瘍は肥厚腫大した膀胱頂部に癒着、連続し、癒着部で子

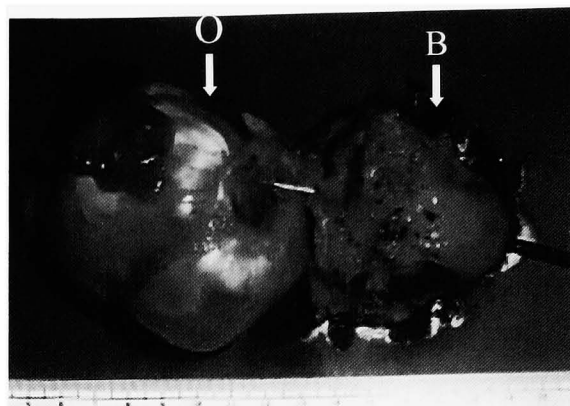


Fig. 2. The right ovary (O) with multilocular cystic tumor and partially resected bladder wall (B). A sound is placed in the vesicofistula towards the perforated ovarian cystic wall.

宮前方に少量の混濁液の貯留を認めた。肥厚腫大した膀胱壁（厚さ約 4 cm、直径約 4 cm）と右付属器を一塊に摘出し、左卵巢は約 1 cm 大の腫瘍を核出した (Fig. 2)。

病理検査所見：右卵巢には内部に毛髪、脂肪織、壁には表皮、毛包、脂腺、軟骨を含む多房性嚢胞を認め、類皮嚢腫の像を呈していた。左卵巢腫瘍も同様の所見であった。右卵巢の嚢胞壁の一部に強いリンパ球浸潤がみられ膀胱との癒着部に連続していた。炎症細胞浸潤は膀胱壁および膀胱粘膜に瘻孔を形成していた。瘻孔の近くでは膀胱壁に接して毛髪を含む膿瘍を認めた。膀胱には炎症性細胞浸潤による膀胱壁の肥厚と瘻孔形成を認めた。

術後経過：術後経過は良好で 8 日目に尿道カテーテルを抜去し、膀胱容量が 100 ml を超えたところで 13 日目に退院した。3 週間後には尿路感染も消失、膀胱容量は 200 ml 以上に改善した。術後 4 年 6 カ月後の現在、尿路感染、腫瘍再発、月経異常などなく、他にも異常所見を認めていない。

考 察

類皮嚢腫は卵巢に好発し、卵巢腫瘍の約 10%¹⁾ を占め、婦人科領域では比較的よく遭遇する腫瘍である。組織学的には胚細胞由来の成熟嚢胞性奇形腫で胎生期の内、中、外胚葉組織から生じた混合腫瘍であり、特に外胚葉成分の皮膚組織の増殖が著明である。一般に 20 代から 30 代の性成熟期婦人に好発し、多くは無症状で経過するが Peterson ら²⁾ の benign cystic teratoma 1,007 例の検討では 19% に合併症（茎捻転 11.5%，破裂 1.3%，感染 1.2%）が認められている。卵巢類皮嚢腫は子宮内膜症による卵巢チョコレート嚢腫などの類腫瘍性病変に比べて腫瘍壁が厚く破裂することは稀であると考えられているが³⁾。茎捻転や梗

塞, 感染, 外傷, 悪性化などにより0.7~3.3%^{2,5)}の頻度で直接腹腔内へ破裂, または膣, 膀胱, 小腸, 直腸, S状結腸などの隣接臓器の内部に瘻孔を形成し後述するような症状を有するようになる。Bhatla ら⁶⁾は卵巣嚢腫の破裂の形式を2つに分けて述べている。1つは突然の破裂により腹腔内へ嚢胞内容が流出し化学的腹膜炎を起こし腹痛として発症する重篤なものである。もう1つは slow leakage により限局性の炎症をきたし腹膜に炎症性の肉芽を形成する場合である。本症例は後者の形式で破裂したものと考えられる。

症状に関しては近藤らが卵巣皮様嚢腫の膀胱穿孔について本邦報告例28例を検討しており⁷⁾, 多くは頻尿, 排尿時痛, 血尿, 膿尿などの非特異的な膀胱刺激症状であるとしている。長谷川ら⁸⁾の報告のように下腹部の激痛を主訴とする症例もあり長谷川らはこれを穿孔例と区別している。これは Bhatla ら⁶⁾の破裂の形式で述べた前者の形式で破裂したものと考えられる。また自験例では認めなかったが本症に特異的な症状として毛髪尿や毛髪, 歯牙を核とした結石形成も多く報告されている。本症例での瘻孔形成は術中所見にて膿瘍を伴っていたことより感染が関与していると考えられた。Pessary などの避妊具の使用による卵管炎, 卵巣炎により卵巣膀胱瘻を形成したとの報告もあるが⁹⁻¹¹⁾ 本症例では避妊具の使用経験はなかった。感染の原因は明らかではないがおそらく嚢胞周囲に炎症が起こり, その炎症性変化による癒着により被膜の一部の血流が低下し, 同部の被膜が欠損するとともに癒着した膀胱への瘻孔を形成したものと考えられる。

治療法としては Andrew ら¹⁰⁾のように抗生剤の点滴投与のみで軽快した症例も報告されているが, 一般的に癒着した膀胱壁を含めた膀胱部分切除および罹患側の卵巣卵管摘除が施行されている。しかし諸家も述べているように癒着の強い症例では必ずしも容易ではない。また類皮嚢胞腫の1.3%²⁾に悪性化を認め, とくに本症例のように両側性の卵巣類皮嚢腫の場合には13%¹²⁾と頻度が上昇するため, 開腹時, 肉眼的に悪性を否定できない場合には術中迅速組織診を行い, 悪性と診断された場合には卵巣癌に準じた術式を選択する必要があると考えられた。卵巣類皮嚢腫は妊娠可能な年齢の女性に好発することもあり妊孕性を温存することも大切であり, 早期の適切な診断および治療が望まれる。

結 語

卵巣類皮嚢腫は卵巣腫瘍の中でも比較的頻度の高い疾患であるがその破裂はきわめて稀である。今回, 感染を契機に発生したと思われる卵巣膀胱瘻を経験したので臨床経過を報告するとともに若干の文献的考察を行った。

文 献

- 1) Jones HW Jr and Jones GS: Benign mature teratoma (Dermoid cyst). In Novak's textbook of gynecology, 10th ed, 560-565
- 2) Peterson WF, Prevost EC, Edmunds FT, et al.: Benign cystic teratomas of the ovary: a clinico-statistical study of 1007 cases with a review of the literature. *Am J Obstet Gynecol* **70**: 368-382, 1955
- 3) 吉形玲美, 矢島正純, 石巻静代, ほか: 卵巣成熟嚢胞性奇形腫破裂の2例. *日産婦東京会誌* **47**: 326-328, 1998
- 4) Stern JL, Buscema J, Rosenshein NB, et al.: Spontaneous rupture of benign cystic teratomas: *Obstet Gynecol* **57**: 363-366, 1981
- 5) Pantoja E, Noy MA, Axtmayer RW, et al.: Ovarian dermoids and their complications. comprehensive historical review. *Obstet Gynecol Surv* **30**: 1, 1975
- 6) Bhatla N, Khanna R and Bhargava VL: Intraperitoneal rupture of benign cystic teratoma. *Int J Gynecol Obstet* **40**: 163-164, 1993
- 7) 近藤典子, 大石賢二, 宮川美栄子, ほか: 卵巣皮様嚢腫の膀胱穿孔の1例. *泌尿紀要* **29**: 893-899, 1983
- 8) 長谷川義和, 磯貝和俊: 小児にみられた左卵巣奇形腫の膀胱穿孔例. *泌尿紀要* **27**: 559-563, 1981
- 9) Yazawa K, Nonomura N, Kokado Y, et al.: Vesico-adnexal fistula following endometriosis of an ovary. *Br J Urol* **79**: 658, 1997
- 10) London AM and Burkman RT: Tuboovarian abscess with associated rupture and fistula formation into the urinary bladder: report of two cases. *Am J Obstet Gynecol* **15**: 1113-1114, 1979
- 11) Carl P: Vesico-ovarian fistula in suppurative ovarian inflammation and salpingitis. *J Urol* **143**: 352-353, 1990
- 12) Taylor CP: Benign cystic teratoma. *Obstet Gynecol* **14**: 523-526, 1959

(Received on July 9, 2003)
(Accepted on December 24, 2003)