

子宮内膜症を合併した膀胱血管腫例

京都第一赤十字病院泌尿器科（院長：管野正雄博士）

六 車 勇 二

京都府立医科大学泌尿器科学教室（主任：小田完五教授）

大 山 朝 弘

村 田 庄 平

VESICAL HEMANGIOMA COMBINED WITH ENDOMETRIOSIS :
A CASE REPORT

Yuji MUGURUMA

*From the Department of Urology, Kyoto First Redcross Hospital**(Director : Prof. M. Sugano, M. D.)*

Choko OYAMA and Shohei MURATA

*From the Department of Urology, Kyoto Prefectural University of Medicine**(Director : Prof. K. Oda, M. D.)*

A case of bladder hemangioma with endometriosis is presented.

A 19-year-old female was admitted to our hospital with a chief complaint of enuresis. Urological examination revealed bladder tumor and hemangioma of the hymen.

Partial cystectomy, appendectomy and resection of hymen were performed. The excised bladder tumor weighed 340 gm. Microscopically, these specimen showed bladder hemangioma associated with bladder endometriosis and hemangioma of the appendix and the hymen.

The surgical extirpation of the bladder tumor resulted in complete relief of her enuresis. The literatures were reviewed and discussed.

は じ め に

る。

膀胱血管腫の最初の報告は欧米では Broca (1869), 本邦では阿久津 (1919) である。渡辺 (1961) によれば国外において 61 例, 本邦において 22 例の報告があるにすぎず, 日常上皮性膀胱腫瘍に接する機会が極めて多いのに反し, 非上皮性腫瘍に包含されている血管腫ははなはだ稀有であることを物語るものである。また膀胱子宮内膜症は欧米では Judd (1921) の報告に始まり, Beacham-McCrea (1955) は 93 例を集め, 本邦では石川 (1919) が最初で, 酒徳 (1964) は 31 例を集めているごとく, これもまた稀有の症例ということが出来る。われわれは最近この両者の合併した症例を経験したので報告す

症 例

患者：岡本某, 20 才, 女子, 工員。

初診：昭和 40 年 4 月 15 日。

主訴：夜尿症。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：生後 2 年ごろ肉眼的血尿をみたことがある他, 特記すべきことなし。

現病歴：生来毎夜遺尿を訴え, 再度にわたり治療を受けたが全く軽快せず当科を受診。排尿痛および排尿困難等の膀胱刺激症状はなく, 排尿回数は昼間 4 ～ 5 回で遺尿なく, 夜間は通常 1 回の遺尿をみる。食欲および睡眠は良好。初潮は 15 才, 以後月経は不順。なお学令期よりときどき血便に気付いていたが放置。

現症：体格, 栄養中等度。皮膚および可視粘膜に軽

度の貧血を認める。胸部は理学的に異常所見なく、腹部に膨隆なく、肝、腎および脾は触知せず。膀胱部に手拳大の可動性の少ない比較的軟い腫瘤を触れるが圧痛なし。両側鼠径部に異常なく、内外陰唇および外尿道口には異常を認めず、処女膜は暗紫色を帯び外方に突出している。その他身体各部に異常所見を認めず。

検査成績：尿：黄褐色，軽度混濁，酸性，蛋白(±)，糖(-)，ウロビリノーゲン(正常)，赤血球(卅)，白血球(+)，上皮細胞(+)，腫瘍細胞(-)，グラム陰性桿菌(++)。

糞便：ベンチジン(+)，グアヤック(-)。

胸部レ線像および心電図：共に異常なし。

血液一般：赤血球数 271×10^4 ，Ht 27%，Hb 7.4g/dl，白血球数 4,400，Meta. (-)，St. 12%，Seg. 40%，Eo. 0%，Mono. 5%，Lymph. 42%，Baso. 1%，血沈 36mm/hr。

血清生化学：血清蛋白 7.0g/dl，A/G 1.3，黄疸指数 4 単位，チモール混濁試験 1.3，硫酸亜鉛試験 11.2 単位，SGOT 18 単位，SGOP 10 単位。血清 Na 145 mEq/L，K 4.3 mEq/L，Cl 108 mEq/L，Ca 7.0 mEq/L。

腎機能：NPN 32mg/dl，BUN 16mg/dl，PSP 15 分 35%，120 分 75%，水試験比重差 1.005～1.021=16。

膀胱鏡所見：容量約 200ml。膀胱粘膜は全般に軽度充血し，右側壁より後壁および頂部にかけて手拳大，表面嚢胞形成のある赤褐色の腫瘤を認める。左尿管口の位置，形状および運動は正常だが，右尿管口は腫瘤のために確認出来ず。青排泄は左側約 5 分で開始，右側も同様約 5 分で腫瘤の下より湧き上るのが見られ，約 6 分で両側とも深青となる。

レ線像：尿路単純撮影では異常陰影なく，排泄性腎盂撮影では右腎杯の軽度の拡張を認める。膀胱撮影にて膀胱上半部に辺縁不規則な陰影欠損を認める。注腸透視にて肛門部より約 15cm の部位に圧迫像を認めるも粘膜面に浸潤の及んでいる所見なし。

直腸鏡所見：肛門より約 15cm の前壁に軽度の充血があるのみで，腫瘍形成はみられず。

以上の諸検査結果より，膀胱腫瘍の診断のもとに膀胱部分切除術および膀胱粘膜剥離術等を施行した。

手術所見：昭和40年7月3日，硬膜外麻酔のもとに型のごとく膀胱高位切開を加えると，膀胱頂部は表面に多数の嚢胞形成のみられる赤褐色，手拳大の腫瘤で占められ，周囲粘膜にも嚢胞形成著明であったが，両側尿管口には浸潤を認めなかった。頂部外側は腹膜との癒着高度で剥離困難であったので腹膜を含めて膀胱部分切除術および腫瘍周囲の粘膜剥離術を行なった。

腹腔内臓器を検索するに卵巣は帯黄色で両側同程度に腫大し，また虫垂は暗赤色で腫大し膀胱の腫瘍とその外観が類似していた。組織学的検査のために右卵巣の一部の試験切除と虫垂切除術を行なった。なお処女膜にも試験切除を行なった。

肉眼的所見：膀胱腫瘍は大きさ 10.0×9.5×7.5cm，重さ 340g の暗赤色弾力性のある腫瘍で，表面凹凸不整，大小の嚢胞形成がみられ暗赤色あるいは黄褐色の内容液を入れている。断面は結節状，暗赤色を帯び，多数の嚢胞形成がみられ，血管形成性変化を推測させる所見であった。

虫垂は 1.8×1.7×7.0cm，暗赤色，表面不整で多数の嚢胞形成がみられ，また管腔には膿の貯溜がみられた。

処女膜は 1.9×1.1×0.7cm，暗赤色柔軟で嚢胞形成がみられた。

右卵巣の一部は 2.9×1.5×0.7cm，帯黄色で嚢胞形成がみられるが，暗赤色を呈した部分はみられなかった。

組織学的所見：膀胱腫瘍の表面は一部移行上皮で被われているが，大部分は剥離脱落し，粘膜下層には一部白血球および小円形細胞の浸潤がみられる。腫瘍塊の大部分は多数の毛細血管叢で占められており，血管壁は一層の内皮で構成されている。内腔は著明に拡張し，赤血球等の血液成分で満されている。間質には結合組織線維が種々の方向に錯綜し，ところどころ脂肪組織および石灰化がみられる。一方腫瘍の膀胱内腔に面した部分には間質をともなった子宮内膜を思わせる腺様構造がみられる。すなわち，核を基底部に有する一層あるいは多層の円柱形あるいは長形の上皮細胞から構成されており，内腔には分泌物と思われる液が貯溜している。貯溜液の多い嚢胞状を呈するところでは一層の扁平化した上皮細胞から構成されている。以上の組織中どこにも悪性化の像はみられなかった。

虫垂は粘膜下層に円形細胞の浸潤著明で，内腔には膿の貯溜がみられ，筋層および漿膜下に血管叢形成が著明である。

処女膜は角質の増殖著明で実質の大部分は多数の血管叢で占められている。

卵巣は間質結合組織の増殖で卵胞の軽度減少および貯溜嚢腫形成がみられた。

以上組織学的に，膀胱腫瘍は血管腫に子宮内膜症の合併したもの，虫垂は虫垂炎および血管腫，処女膜は血管腫であり卵巣は貯溜嚢腫と診断される。

考 按

膀胱血管腫とは Herbut (1952) によれば，

新生物というよりむしろ一種の過誤腫であって、血管組織からなる迷入組織の發育増大したものであり、一方子宮内膜症とは子宮内膜に類似の腺組織が異所性に發育増大したものであるといわれている。

發生年令：血管腫は23ヵ月 (Stanley) より75才 (奥井) まで巾広く分布しているが、Liang (1958) あるいは Litin (1961) によれば、約半数が、稻田 (1962) によれば23例のうち40%が、ともに20才代までにみられるという。これに対し子宮内膜症は Kretschmer は、18才より48才までに発見されるといい、通常性成熟婦人、ことに30才代に最も多く、本邦でも百瀬 (1957) の57才、酒徳 (1964) の50才等の閉経以後の発症例以外は大部分が30才代に発症している。自験例は20才であった。

臨床症状：両疾患は次にのべる訴えの間に重要度に差があるとはいへ、血尿を始めとし頻尿、残尿感、排尿痛等を有している。特に血尿は血管腫には代表的な症状で、程度および持続期間は種々であるが、ほとんど必発である。血尿をみなかった症例は極めて少なく、Csermely (1939) の剖検例、Graham (1955) および Liang (1958) の腹部痛例、小林 (1938) の腎部疼痛および奥井 (1952) の尿閉例等が散見されるにすぎない。子宮内膜症の場合の血尿は月経時に増悪することが特徴であるとされるが、發生頻度は石津 (1959) の41%、Beacham-McCrea (1955) の19.6%である。両者とも頻尿、残尿感および排尿痛等がみられるが、これは2次的炎症のための膀胱刺激症状と考えられる。

自験例においては幼児期に肉眼的血尿の訴えがあったが、主訴は夜間遺尿である点、多少異例に属するものと思われる。

發生部位および大きさ：血管腫について Herbut は三角部、Graham (1955) および Stanley (1966) は頂部、Liang (1958) および Litin (1961) は三角部から頂部を好発部位としているが、佐藤 (1959) は内外文献上64例の観察から一定の好発部位はないとしている。

大部分が単発性であるが、ときに多発し、大きさは Segel (1942) によれば、40例中3cm以上が17例、それ以下が23例あったとしている。

通常は帽針頭大から小児拳大までで、ときに膀胱全体を占めるものもあるという。

一方子宮内膜症は、通常子宮前壁と接する膀胱後壁底部から三角部に好発し、大きさは拇指頭大から鶏卵大までである。

自験例は血管腫が大部分を占め、小指頭大の子宮内膜症はこれと重なって膀胱内腔に面した部位に発生し、合せて大人拳大340gであった。

診断：終局には組織学的診断によらねばならないが、臨床症状、膀胱鏡検査および膀胱部レ線検査などが診断に根拠を与える。血管腫は膀胱鏡的には境界明瞭な大小の囊腫を有する表面不整の赤褐色あるいは暗紫色の腫瘤で、軽度に隆起し容易に出血するのがみられる。一方子宮内膜症の場合にも暗紫色の囊腫を有する円形多胞性の腫瘤を見るが、表面は正常の粘膜に被われ周囲組織は浮腫状を呈し、しかもこれらが月経周期に伴って青みを帯びかつ増大するのがみられる。ただし性周期に伴って反応しない症例も時にみられる。

出血性膀胱炎、静脈瘤および膀胱腫瘍等との鑑別が必要であり、自験例の場合、両者の合併を膀胱鏡的に推測することは不能であった。

レ線学的にも増大した腫瘤は陰影欠損として認め得るので補助的診断に役立つ。

身体他部に合併する血管腫が膀胱血管腫の診断の参考になることを Macalpine (1930) が最初に指摘し、Chopra (1965) によれば、約1/4の症例が身体のいずれかの臓器あるいは組織に血管腫を有しているとしている。自験例のように外性器および腸管に血管腫を有するものには、Debaisieux (1930)、Cirio (1933) および植松 (1957) の症例が見られる。

既往の手術、特に婦人科の手術および外科的開腹術が子宮内膜症の発生に関係があるといわれており、これら手術の既往も診断上無視することは出来ない。

自験例ではレ線学的に広範な陰影欠損がみられ、膀胱鏡的所見が特異的であり、外性器に血管腫をみたことは診断の参考となるものの、手術の既往あるいは月経時血尿はなく、しかも夜尿症を主訴とした異型に属する症例のため、組

組織学的検索を行うまでは血管腫に子宮内膜症を合併していることは全く予測出来なかった。

治療：両者ともほとんどの報告例で腫瘍剔除術あるいは膀胱部分切除術が行なわれている。血管腫の場合 Liang は放射線療法で著効のあった症例を報告しており、Segel は各種の治療を行なった症例22例中4例の再発を見た報告している。子宮内膜症の場合には年齢および子宮との癒着の程度を考慮して放射線照射による去勢術あるいはホルモン療法が行なわれることもある。ともあれ自験例のごとく膀胱部分切除術と周囲粘膜の剥離術の併用は再発防止の面からも最適の治療法と思われる。

組織所見：血管腫は粘膜下層に多量の血液を満した大小の相互に交通性のある腔を有し、管腔壁は扁平な一層の内被細胞により構成されている。間質には線維組織、筋組織および脂肪組織等がみられる。悪性化の像は通常みられず周囲組織への直接的な拡大がみられるにすぎない。

子宮内膜症の場合は基底部に核を有する単層または多層の円柱上皮、時に線毛を有する上皮が腺管様あるいは嚢胞状に排列し、内腔に分泌液、血液またはその変性物質を容れ、間質は円柱形または長円形の核を有する粗な結合織よりなり、それらは相互にゆるく結合しているように見える。ときに間質に小円形細胞の浸潤を見ることがある。またこれらの腺様構造が膀胱壁の深部のみならず子宮内膜層にまで連続していることもある。

自験例では腫瘍の大部分が典型的な血管腫の像を呈しており、膀胱内腔に面した部分に小指頭大の子宮内膜症を思わす全く別個の腺様構造がみられたのであるが、このような症例の報告は他にみられない。次に述べる発生原因とも関連してはなはだ興味のある所見である。

発生原因：血管腫の発生は先天的なもので、血管組織より成る腫瘍様の組織奇形が発育増大したものと見做されている。約半数が20才までにみられ、他の部位の血管腫が同時に発見されることが多いことは、成因の一端を示すものである。

子宮内膜症の発生原因は Sampson (1921) の

時代より種々論ぜられて来たが、現在定説はなく、Novak (1963) は implantation method (Sampson) と celomic metaplasia doctrine (Novak) とに分け、発生原因の解明には今後の研究を待たねばならないとしている。

Sampson は剥離組織が月経血と共に子宮の正常経路を通らずに、卵管を経て骨盤腔に逆行性に移植されるとしており、Scott (1950) は動物実験で、Ridley (1958) は臨床実験でこのことを証明している。かなりの症例のリンパ系に子宮内膜組織が見られること、上肢等の遠隔部位に発生した症例では血流による播種が考えられること、また多くの症例のうちには子宮内膜から直接的に侵入のみられるものもあり、臨床的にも婦人科手術の既往が子宮内膜症の発生に関連していると考えられることなどは、implantation method の拠点となる事例である。

一方、発生学的に尿生殖器は celomic epithelium を発生母地とすることから、尿路粘膜は子宮内膜組織に化生する能力を内在しており、ホルモン (Novak) あるいは炎症 (Meyer) 等何らかの刺激によって発生母地を同じくする組織へ変化し得るとの考え方が celomic metaplasia doctrine である。Friedmann (1959) は膀胱外反症に子宮内膜症を思わせる所見を認め、子宮内膜症の発生に対する化生の重要性を説いている。

いずれにしろ、子宮内膜症の発生原因については一定の見解には達していないのが現状である。

自験例の場合、想像の域を出ないが婦人科手術の既往がなく、比較的大きい血管腫の膀胱内に面した極く浅いところに腺様構造がみられ、筋層にはほとんど侵入していないことから、子宮内膜組織の移植によるものと考ええるよりも、炎症あるいは血管腫の増大等の刺激による正常膀胱上皮の化生が腺様構造の発生を来したものととは考えられないであろうか。

お わ り に

340 g の巨大膀胱血管腫に子宮内膜症を合併した極めて珍らしい症例を報告し、若干の考察を行なった。

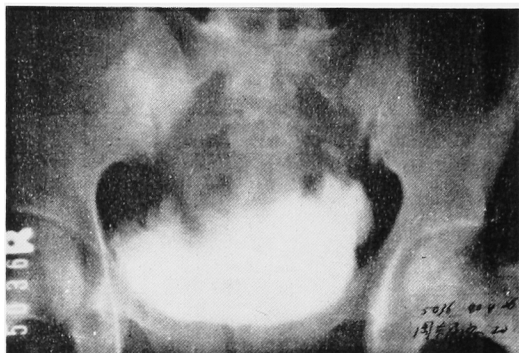
稿を終るにあたり、御校閲を賜った小田完五教授、組織所見について御教示いただいた本学病理学教室三宅清雄教授ならびに陳震東講師に対し深甚なる謝意を表する。

なお本論文の要旨は第16回日本泌尿器科学会中部連合地方会において演述した。

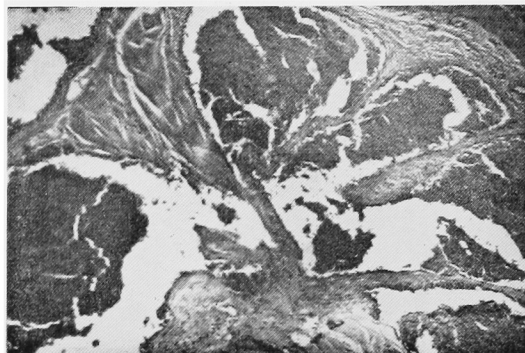
参 考 文 献

- 1) Anderson, W. A. D. : Pathology, St. Louis the C. V. Mosby, 1963.
- 2) Chopra, R. P. : J. Urol., **94** : 56, 1965.
- 3) Friedmann, N. B. & Ash, J. E. : Tumors of the Urinary Bladder, in Atlas of Tumor Pathology, Washington A. F. I. P., 1959.
- 4) Fuqua, F. J. Urol., **74** : 82, 1955.
- 5) 古沢太郎 : 臨床皮泌, **9** : 129, 1955.
- 6) Graham, J. B. : J. Urol., **74** : 777, 1955.
- 7) Hamscher, J. B. : J. Urol., **80** : 299, 1958.
- 8) Herbut, P. A. : Urological Pathology, Lea & Febriger, Philadelphia, 1952.
- 9) 石津 俊 : 臨床皮泌, **11** : 670, 1957.
- 10) 稲田俊雄 : 癌の臨床, **8** : 800, 1962.
- 11) Kretchmer, H. L. : J. Urol., **53** : 459, 1945.
- 12) Launchlan, M. B. Amer. J. Obst. & Gynec. **94** : 533, 1966.
- 13) Liang, D. S. : J. Urol., **79** : 956, 1958.
- 14) Litin, R. B. : J. Urol., **85** : 556, 1961.
- 15) Mcintosh, F. K. : J. Urol., **73** : 820, 1955.
- 16) Melicow, M. M. : J. Urol., **74** : 498, 1955.
- 17) Moor, J. D. : J. Urol., **49** : 171, 1943.
- 18) Mortensen, H. : J. Urol., **64** : 396, 1950.
- 19) 前川正信 : 泌尿紀要, **11** : 56, 1965.
- 20) 百瀬剛一 : 臨床皮泌, **11** : 670, 1957.
- 21) Ney, C. & Friedenber, R. M. . Radiographic Atlas of the Genitourinary System. J. B. Lippincott, Philadelphia, 1966.
- 22) Novak, E. R. : Novak's Gynec. Obstet. Path., W. W. Sanders Philadelphia, 1963.
- 23) Clin Obst. Gynec., **3** : 413, 1960.
- 24) 能中陽一 : 臨床皮泌, **14** : 68, 1960.
- 25) 西川恵章 : 泌尿紀要, **7** : 144, 1961.
- 26) 奥井重敬 : 臨床皮泌, **6** : 497, 1952.
- 27) Russell, M. : J. Urol., **79** : 823, 1958.
- 28) Sampson, J. A. : Am. J. Obst. & Gynec., **10** : 649, 1925.
- 29) Segel, A. D. : J. Urol., **47** : 453, 1942.
- 30) Scott, R. B. : Am. J. Obst. & Gynec., **66** : 1052, 1953.
- 31) Stanley, K. E. Jr. : J. Urol., **96** : 51, 1966.
- 32) Stitt, R. B. J. Urol., **96** : 733, 1966.
- 33) 杉村克治 : 泌尿紀要, **5** : 45, 1959.
- 34) 酒徳治三郎 : 泌尿紀要, **10** : 213, 1964.
- 35) 白石祐逸 : 臨床皮泌, **19** : 669, 1965.
- 36) 佐藤昭太郎 : 日泌尿会誌, **50** : 64, 1959.
- 37) 多田正之 : 泌尿紀要, **9** : 612, 1963.
- 38) 東福寺英之 : 臨床皮泌, **17** : 31, 1963.
- 39) 植松文康 : 臨床皮泌, **11** : 29, 1957.
- 40) Willis, R. A. . Path. of Tumors, London, Bulterworth Co., 1948.
- 41) 渡辺悌三 : 臨床皮泌, **18** : 81, 1964.

(1967年8月21日受付)



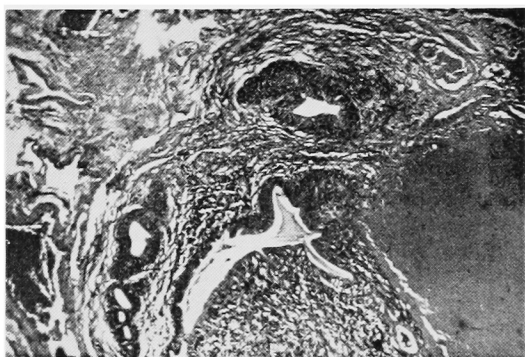
第1図 膀胱レ線像



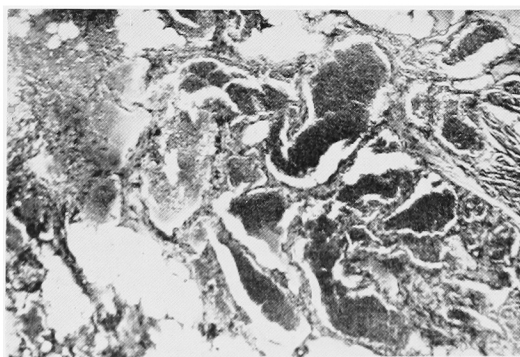
第4図 血管腫の部分（強拡大）



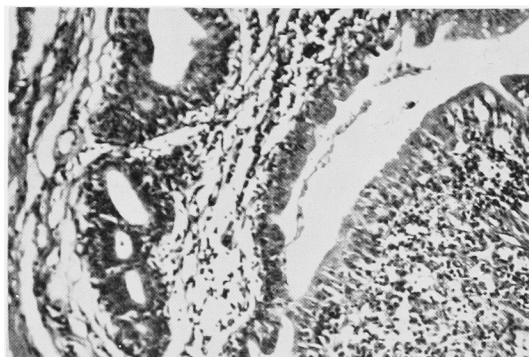
第2図 剔出標本



第5図 子宮内膜症の部分（H E）



第3図 血管腫の部分（H E）



第6図 子宮内膜症の部分（強拡大）