

## 経尿道的開窓術を施行した成人 Cowper's syringocele の1例

増田 憲彦, 三品 睦輝, 北村 悠樹, 眞鍋 由美

佐倉 雄馬, 伊東 晴喜, 奥野 博

国立病院機構京都医療センター泌尿器科

A CASE REPORT OF COWPER'S SYRINGOCELE IN  
AN ADULT TREATED WITH TRANSURETHRAL UNROOFING

Norihiko MASUDA, Mutsuki MISHINA, Yuki KITAMURA, Yumi MANABE,

Yuma SAKURA, Haruki ITOH and Hiroshi OKUNO

*The Department of Urology, National Hospital Organization Kyoto Medical Center*

We present an adult case of Cowper's syringocele. A 19-year-old male presented with the chief complaint of persistent post-voiding dribbling 5 months after onset. Urethroscopy demonstrated a thin membrane with a small orifice on the ventral aspect distal to the external sphincter. Magnetic resonance imaging showed a restiform shadow on the left side of the corpus spongiosum. Retrograde urethrogram showed filling of diverticulum-like structure in the region of urethral bulb terminating in the urogenital diaphragm. Considering the results mentioned above, we diagnosed the patient with Cowper's syringocele. Transurethral unroofing of the Cowper's syringocele was performed with a cold knife, and the excessive tissue on the edge of syringocele was electroresected to avoid recurrence. His post-voiding dribbling resolved completely after the procedure and has not recurred in 13 months postoperatively. Cowper's syringocele is typically diagnosed presenting with hematuria, urinary tract infection, and disuria in male infants and children. Adult cases of Cowper's syringocele are rare, and only 32 cases including the present case have been reported. Proper awareness of this entity and careful evaluation are important if patients present with persistent adult-onset voiding dysfunction.

(Hinyokika Kiyo 58 : 355-359, 2012)

**Key words :** Cowper's syringocele, Cowper's gland, Post-voiding dribbling, Transurethral unroofing

## 緒 言

Cowper's syringocele とは Cowper's gland の開口部の狭窄, 閉塞などにより引き起こされる Cowper's gland duct の拡張である。尿路感染, 肉眼的血尿, また排尿後尿滴下などの排尿障害を呈することが知られており, 幼児期での発症が主であるが<sup>1)</sup>成人発症例も散見される。今回われわれは成人で Cowper's syringocele により排尿後尿滴下を来とし, 経尿道的開窓術により改善した1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

## 症 例

患者 : 19歳, 男性

主訴 : 排尿後尿滴下

家族歴 : 特記すべきことなし

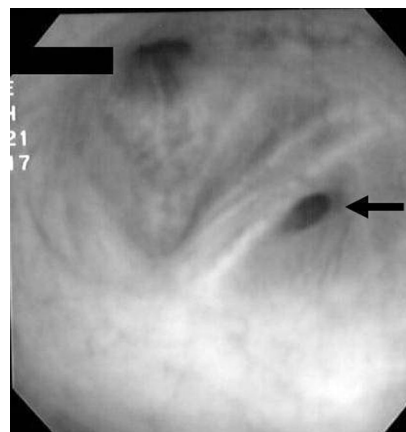
既往歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 2009年7月, 誘因なく排尿後尿滴下が出現したため近医より精査加療目的にて2009年12月に当院紹介となった。

血液生化学検査 : 血液一般, 肝機能, 腎機能, 電解

質いずれも正常。検尿 ; pH 1.020, 糖 (-), 蛋白 (-), ケトン体 (-), 潜血 (-), 白血球反応 (-)。

神経因性膀胱を疑い抗コリン剤の投与, 干渉低周波治療などを行うも6カ月間症状の改善を認めなかった。そのため内視鏡を含めた画像検査を行った。膀胱



**Fig. 1.** Urethroscopy demonstrated a thin membrane with a small orifice (arrow) on the ventral aspect distal to the external sphincter.



**Fig. 2.** MRI showed a restiform shadow (arrows) on the left side of the corpus spongiosum.



**Fig. 3.** Retrograde urethrogram showed filling of diverticulum-like structure (arrows) in region of urethral bulb. It terminated in the region of the urogenital diaphragm.

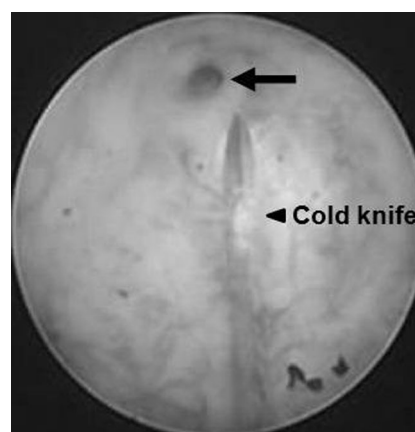
尿道鏡検査を施行したところ、尿道括約筋手前に小孔を伴う膜状構造を認めた (Fig. 1)。尿管口の位置は両側とも正常であり、尿管異所開口を疑わせる所見は認めなかった。骨盤 MRI 撮影では尿道海綿体左側に索状影 (Fig. 2)、また逆行性尿道造影では球部尿道に憩室様の構造物を認めた (Fig. 3)。尿路との交通性を評価するため経尿道的に尿管カテーテルを用いての造影検査を施行した。ガイドワイヤーを小孔に挿入し盲端になっていることを確認、また造影にて先ほどの憩室様構造物とその中枢側で尿生殖隔膜付近に位置する小室構造を認めた。拡張した Cowper's gland と、Cowper's gland duct が嚢胞状に拡張した Cowper's syringoceles とが造影されていると診断した。

排尿時に Cowper's syringocoele 内に貯留した尿が排尿後に尿道に滲み出てくるため排尿後尿滴下を来すと考えられた。会陰部圧迫による排尿指導を行うも症状改善認めなかったため、症状改善目的に2010年9月、全身麻酔下に経尿道的開窓術を施行した。体位は碎石位として内尿道切開刀 (Karl Storz 社製, 21Fr)

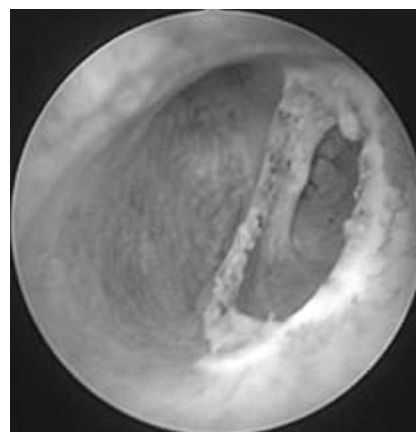
を挿入、術前膀胱尿道鏡で認めた尿道内の小孔を確認した。Cowper's syringocoele を cold knife で開窓し内腔を観察したところ、Cowper's gland へ続くと思われる小孔を認めた。続いて Collins knife を用いて粘膜壁を蒸散させ大きく開窓した (Fig. 4)。術翌日に尿道カテー



a



b



c

**Fig. 4.** a: The Cowper's syringocoele was taken marsupialization with cold-knife (arrow). b: Urethroscopy demonstrated inside of the unroofed Cowper's syringocoele. We could recognize an outlet of Cowper's gland (arrow). c: Postoperative view of the bulbar urethra after the excessive tissue on the edge of Cowper's syringocoele was electroresected.

テルを抜去し, その時点から排尿後尿失禁の消失を認めた. 術後13カ月の時点では再発を認めていない.

## 考 察

Cowper's gland (尿道球腺) は胎生 9 週頃に尿生殖洞より発生した endodermal epithelial bud (内胚葉性上皮蕾) が発達したものである<sup>2)</sup>. 膜様部尿道腹側に位置する約 1 cm の一対の構造物であり, 性的興奮によりアルカリ性の粘液を Cowper's gland duct を通じて球部尿道へ分泌し精液の凝固, また尿道通過性を潤滑にするなどの働きを持つ. Cowper's gland duct の拡張に関する報告は19世紀に入り散見されるようになり<sup>3)</sup>, "lesions of Cowper's ducts", "retention cysts", "diverticula and cystic abnormalities of the ducts of Cowper's glands" など様々な呼称で呼ばれていたが<sup>2)</sup>, Maizels<sup>4)</sup>らにより Cowper's syringocele (ギリシャ語で, syngo = tube, cele = swelling) という用語が提唱され広く認識されるところとなった. 1886年に Elbogen が検死解剖により2.3%の症例で Cowper's syringocele を認めたと報告している<sup>5)</sup>. また対象症例の背景は不明であるが1964年には195人の男児に対する膀胱造影で1.5%の症例で syringocele を認めたと報告されている<sup>3)</sup>. それ以降は発症頻度に関する報告はない. 新生児期から17歳頃までに尿路感染や血尿を契機に尿道内腫瘍として発見されることが多いため<sup>1)</sup>, 成人での報告例が少ないと考えられる<sup>2,6-16)</sup>. 発症の機序として球部尿道への開口部の狭窄により Cowper's gland duct が拡張することが考えられている. 生下時より狭窄や閉塞を伴うことによる先天性のタイプと, 尿道炎やカテーテル長期留置に伴う尿路感染や外傷に起因して狭窄が引き起こされる後天性のタイプとがあると推測される<sup>12)</sup>が,

両者とも様々な形態の syringocele を形成しうるため鑑別は困難と考えられる. Maizels は Cowper's syringocele を尿道造影の所見により, i) simple type, ii) imperforate type, iii) perforate type, iv) ruptured type の4タイプに分類した<sup>4)</sup> (Fig. 5). Simple type ではわずかに拡張した duct への造影剤流入を認めるのみで症状を来すことは少ない. Imperforate type では Cowper's gland duct から球部尿道への開口部の高度の狭窄, または閉塞があるため duct の内部は造影されず, 高度に拡張した syringocele が尿道を圧迫し排尿障害を来す. また perforate type では開口部の高度の開大により duct が嚢胞状に大きく拡張し, syringocele 内へ尿が流入することによる尿路感染, 血尿, 排尿後尿滴下の原因となる. Rupture type では開口部の開大, duct の嚢胞状の拡張に加えて Cowper's gland からの主流入路が消失しており, 尿の流入による症状, syringocele の粘膜壁が尿道内に突出することによる尿閉, など多岐に亘る症状を引き起こすと考えられている.

同様の症状を来す鑑別疾患としては前部尿道憩室, 前部尿道弁, 異所性尿管などがあがり, 膀胱尿道鏡や尿道造影 (逆行性, 排泄時) などで診断可能である. ただし imperforate type では造影剤の流入を認めず尿道圧排像のみを示すため尿道, 直腸周囲膿瘍や腫瘍などの除外が必要となり<sup>7)</sup>, その場合には経直腸, 経会陰エコー検査や<sup>8)</sup>, CT, MRI, 直腸鏡検査などの追加が有用である<sup>17)</sup>.

無症候性で偶然に発見された症例であれば治療は不要であるが, 症候性症例に対してはまず経尿道的開窓術を施行している報告が多く見受けられる. Bugbee electrode, Collins knife<sup>2)</sup>, Holmium: YAG レーザーによる切開<sup>1)</sup>など様々な方法が用いられており, 切開方法による治療効果の差については不明である. 血尿や尿路感染は外科的治療により多くの症例で改善を認めているが, 排尿障害は持続する可能性がある<sup>2,4)</sup>. 難治性の症例では経会陰的に Cowper's gland duct の尿道への流出路を結紮することにより尿の逆流を防止する方法が取られている. 成人報告例ではいずれも結紮術により良好な成績を得ているが, 残存した duct が尿道近傍にある場合には再拡張により尿道圧迫症状が出現してくる可能性も考えられるため, 結紮部位と尿道とが十分に距離を取れているか注意する必要がある<sup>6)</sup>.

本症例を加えた成人症例の国内外32例 (本邦2例) をまとめて Table 1 に示した (Table 1). 18歳から78歳まで幅広く認められ, 15例で先行する尿路感染, または外傷歴があり, 2例で前立腺全摘除術の既往を認めた. Simple type は8例, imperforate type は7例, perforate type は16例, rupture type は1例であった.

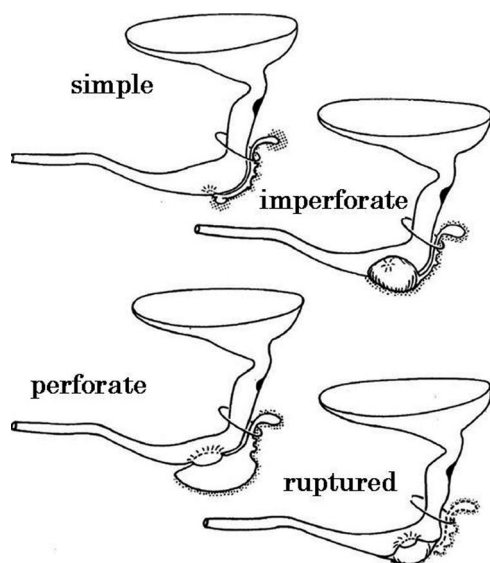


Fig. 5. Schematic drawings of types of Cowper's syringoceles (modified from Maizels M, J Urol 129: 111-114, 1983).

**Table 1.** Clinical characteristics of 32 cases of Cowper's syringocele in adults

| No | Author                 | Year | Age | Type        | Previous urinary tract infection | Previous trauma | Perineal pain | Disuria | Post-micturition dribble | Macroscopic hematuria | Urinary retention | Treatment   | Follow up post op (Mo.) |
|----|------------------------|------|-----|-------------|----------------------------------|-----------------|---------------|---------|--------------------------|-----------------------|-------------------|-------------|-------------------------|
| 1  | Ansell <sup>16)</sup>  | 1976 | 44  | Imperforate | No                               | No              | Yes           | Yes     | No                       | No                    | No                | Unroofing   | —                       |
| 2  | Sant <sup>2)</sup>     | 1985 | 26  | Perforate   | No                               | —               | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | 3                       |
| 3  | Burks <sup>13)</sup>   | 1988 | 26  | Imperforate | No                               | —               | No            | Yes     | Yes                      | Yes                   | No                | Unroofing   | 1                       |
| 4  | Mansson <sup>14)</sup> | 1989 | 22  | Perforate   | No                               | No              | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | —                       |
| 5  | Mansson <sup>14)</sup> | 1989 | 22  | Perforate   | Yes                              | No              | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | —                       |
| 6  | Mansson <sup>14)</sup> | 1989 | 23  | Perforate   | No                               | No              | Yes           | No      | Yes                      | Yes                   | No                | None        | —                       |
| 7  | Mansson <sup>14)</sup> | 1989 | 35  | Perforate   | No                               | No              | No            | No      | No                       | Yes                   | No                | Unroofing   | —                       |
| 8  | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 60  | Simple      | No                               | Yes             | No            | Yes     | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 9  | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 27  | Simple      | No                               | No              | Yes           | Yes     | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 10 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 55  | Simple      | No                               | Yes             | No            | No      | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 11 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 30  | Simple      | Yes                              | No              | No            | Yes     | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 12 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 78  | Simple      | No                               | No              | No            | No      | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 13 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 70  | Simple      | No                               | No              | No            | Yes     | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 14 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 25  | Simple      | No                               | No              | No            | Yes     | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 15 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 46  | Simple      | No                               | No              | No            | No      | No                       | No                    | Yes               | —           | —                       |
| 16 | Yaffe <sup>15)</sup>   | 1991 | 27  | Perforate   | No                               | No              | Yes           | No      | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 17 | Merchant <sup>8)</sup> | 1997 | 30  | Imperforate | Yes                              | —               | No            | Yes     | No                       | No                    | No                | —           | —                       |
| 18 | Selli <sup>10)</sup>   | 1997 | 48  | Imperforate | Yes                              | —               | Yes           | Yes     | No                       | No                    | No                | Ligation    | 12                      |
| 19 | Richter <sup>9)</sup>  | 1998 | 27  | Perforate   | Yes                              | —               | No            | Yes     | No                       | No                    | No                | Unroofing   | 36                      |
| 20 | Richter <sup>9)</sup>  | 1998 | 39  | Perforate   | Yes                              | —               | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | 14                      |
| 21 | Awakura <sup>11)</sup> | 2000 | 21  | Rupture     | —                                | Yes             | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | 3                       |
| 22 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 29  | Imperforate | Yes                              | No              | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | 23                      |
| 23 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 43  | Perforate   | No                               | No              | No            | No      | No                       | Yes                   | No                | None        | 18                      |
| 24 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 24  | Perforate   | Yes                              | No              | Yes           | No      | Yes                      | Yes                   | No                | Unroofing   | 10                      |
| 25 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 51  | Perforate   | Yes                              | No              | No            | Yes     | Yes                      | Yes                   | No                | Unroofing   | 9                       |
| 26 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 38  | Perforate   | Yes                              | No              | No            | No      | No                       | Yes                   | No                | None        | 9                       |
| 27 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 46  | Perforate   | Yes                              | No              | Yes           | Yes     | Yes                      | Yes                   | No                | None        | 6                       |
| 28 | Bevers <sup>12)</sup>  | 2000 | 25  | Perforate   | No                               | Yes             | No            | No      | Yes                      | Yes                   | No                | Unroofing   | 6                       |
| 29 | Kumar <sup>7)</sup>    | 2007 | 30  | Imperforate | —                                | —               | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Ligation    | 15                      |
| 30 | Santin <sup>6)</sup>   | 2009 | 26  | Imperforate | —                                | —               | No            | Yes     | No                       | Yes                   | Yes               | Unroofing*  | 45                      |
| 31 | Santin <sup>6)</sup>   | 2009 | 18  | Perforate   | —                                | —               | Yes           | Yes     | No                       | No                    | No                | Unroofing** | 5                       |
| 32 | Our case               | 2011 | 19  | Perforate   | No                               | No              | No            | No      | Yes                      | No                    | No                | Unroofing   | 13                      |

—: unknown, Mo: month, \*: The symptoms recurred 2 years after unroofing, the duct was ligated transperineally, \*\*: Repeated unroofing 7 years after the first procedure ended in failure, so the patient elected to undergo Cowper's duct ligation next year.

多くは排尿障害や排尿後尿滴下などの排尿症状を主訴に受診しており、それらの症状を認めず顕微鏡的血尿の精査などで発見されたのは6例のみであった。18例で外科的治療が行われており、14例で開窓術、2例で経会陰的結紮術、2例で開窓術の後に再発を来したため結紮術を施行されている。再発を来した1例では開窓術後2年で再発に対し結紮術を施行され、もう1例では開窓術後7年で再発、再度の開窓術を行うも翌年に再発し結紮術を施行されている。本症例では先行する尿路感染、外傷などを伴わずに誘因なく排尿後尿滴下を来した。おそらくは先天的に存在していた

imperforate type の syringocele が尿道に突然開口し、perforate type となったことにより排尿後尿滴下を発症したと考えられる。経尿道的開窓術により症状改善を認めたが、再発の可能性もあるため今後のフォローアップが必要である。誘因なく発症した排尿障害を認めた場合には成人であっても Cowper's syringocele の可能性を考慮すべきであると考えられた。

## 結 語

成人での Cowper's syringocele に対して経尿道的開窓術を施行し、排尿後尿滴下の改善を認めた1例を経

験したので, 若干の文献的考察を加え報告した.

本論文の要旨は第215回日本泌尿器科学会関西地方会 (ベストプレゼンテーション賞受賞) において発表した.

## 文 献

- 1) Piedrahita YK and Palmer JS : Case report : Cowper's syringocele treated with Holmium : YAG laser. *J Endourol* **20** : 677-678, 2006
- 2) Sant GR and Kaleli A : Cowper's syringocele causing incontinence in an adult. *J Urol* **133** : 279-280, 1985
- 3) Dewan PA : A study of the relationship between syringoceles and Cobb's collar. *Eur Urol* **30** : 119-124, 1996
- 4) Maizels M, Stephens FD, Firlit CF, et al. : Cowper's syringocele : a classification of dilatations of Cowper's gland duct based upon clinical characteristics of 8 boys. *J Urol* **129** : 111-114, 1983
- 5) Dhillon HK, Yeung CK, Ransley PG, et al. : Cowper's glands cysts-a cause of transient intra-uterine bladder outflow obstruction ? *Fetal Diagn Ther* **8** : 51-55, 1993
- 6) Santin BJ and Pewitt EB : Cowper's duct ligation for treatment of disuria associated with Cowper's syringocele treated previously with transurethral unroofing. *Urology* **73** : 681.e11-13, 2009
- 7) Kumar J, Kumar A, Seth A, et al. : Cowper's syringocele in an adult. *Abdom Imaging* **32** : 428-430, 2007
- 8) Merchant SA, Amonkar PP and Patil JA : Imperforate syringoceles of the bulbourethral duct : appearance on urethrography, sonography, and CT. *AJR Am J Roentgenol* **169** : 823-824, 1997
- 9) Richter S, Shalev M and Nissenkorn I : Late appearance of Cowper's syringocele. *J Urol* **160** : 128-129, 1998
- 10) Selli C, Nesi G, Rizzo M, et al. : Cowper's gland duct cyst in an adult male : radiological and clinical aspects. *Scand J Urol Nephrol* **31** : 313-315, 1997
- 11) Awakura Y, Nonomura M and Fukuyama T : Cowper's syringocele causing voiding disturbance in an adult. *Int J Urol* **7** : 340-342, 2000
- 12) Bevers RF, Abbekerk EM and Boon TA : Cowper's syringocele : symptoms, classification and treatment of an unappreciated problem. *J Urol* **163** : 782-784, 2000
- 13) Burks D and Grossman HB : Urethral cyst in a man. *J Urol* **140** : 611-612, 1988
- 14) Mansson W, Colleen S and Holmberg JT : Cystic dilation of Cowper's gland duct-an overlooked cause of urethral symptoms ? *Scand J Urol Nephrol* **23** : 3-5, 1989
- 15) Yaffe D and Zissin R : Cowper's glands duct : radiographic findings. *Urol Radiol* **13** : 123-125, 1991
- 16) Ansell JS : Cysts of the ducts of Cowper's glands. *J Urol* **115** : 390-391, 1976
- 17) Melquist J, Sharma V, Khan SA, et al. : Current diagnosis and management of syringocele : a review. *Int Braz J Urol* **36**:3-9, 2010

(Received on February 2, 2012)

(Accepted on March 12, 2012)