

共通尿生殖洞を伴う尿管異所開口の1例

—本邦尿管異所開口648例についての統計的観察—

長野県立須坂病院泌尿器科 (院長: 熊谷信夫)

寺 田 為 義

長野県立須坂病院小児科 (院長: 熊谷信夫)

新 川 一 雄

長野県立須坂病院産婦人科 (院長: 熊谷信夫)

内 藤 威

富山医科薬科大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 片山 喬教授)

片 山 喬

ECTOPIC URETERAL OPENING WITH COMMON UROGENITAL SINUS

REVIEW OF THE LITERATURE OF 648 CASES IN JAPAN

Tameyoshi TERADA

*From the Department of Urology, Nagano Prefectural Suzaka Hospital
(Chief: Dr. N. Kumagai)*

Kazuo ARAKAWA

*From the Department of Pediatrics, Nagano Prefectural Suzaka Hospital
(Chief: Dr. N. Kumagai)*

Takeshi NAITO

*From the Department of Obstetrics and Gynecology, Nagano Prefectural Suzaka Hospital
(Chief: Dr. N. Kumagai)*

Takashi KATAYAMA

*From the Department of Urology, Faculty of Medicine, Toyama Medical and Pharmaceutical University
(Director: Prof. T. Katayama)*

A 3-year-old girl was admitted with continuous enuresis. Urological examination and operation disclosed the left upper ureter ectopically opened into the vagina, and the vagina opened into the urethra (common urogenital sinus). Vesicoureteroneostomy was performed, and after the operation, incontinence disappeared.

The 648 cases reported in Japan were discussed.

Key words: Ectopic ureteral opening, Common urogenital sinus

緒 言 症 例

尿管異所開口は尿管奇形の中でも特に珍しいものではなく、すでに本邦でも600例以上が報告されている。今般われわれは尿管異所開口に共通尿生殖洞を伴った本邦初と思われる症例を経験したので若干の文献的統計的考察を加え報告する。

患者: 3歳女子
主訴: 尿失禁
初診: 1986年9月3日
家族歴: 特記すべきことなし。両親は血族結婚ではなく、父34歳、母26歳の時の第1子であり、同胞はい

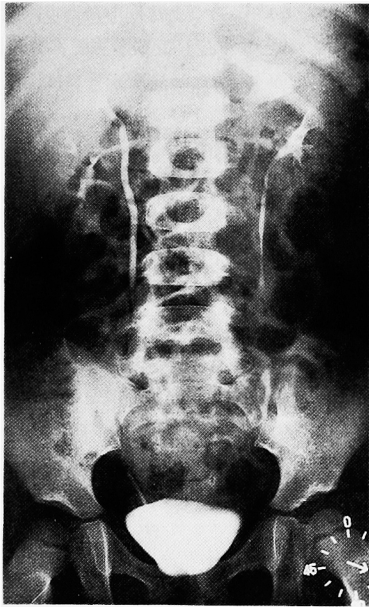


Fig. 1. DIP

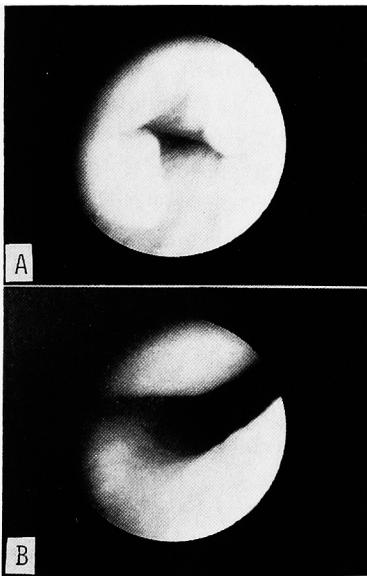


Fig. 2-A, B. 尿道鏡—尿道6時方向に腔の開口部を認める.

ない。

既往歴：特記すべきことなし。母親は患者を妊娠中特に異常なく、黄体ホルモン製剤などの投与も受けていない。満期産で出生後の成長も順調、知能・運動能も年齢相応である。

現病歴：1986年春よりオムツからの離脱を試みたが昼夜を問わず尿失禁が続いていた。意識下の自力排尿

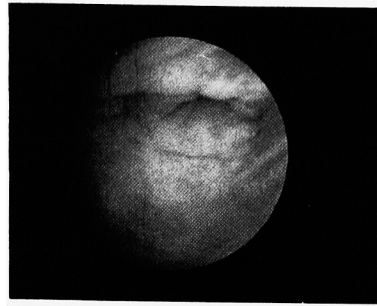


Fig. 3. 尿道鏡—腔内および子宮腔部を認める.

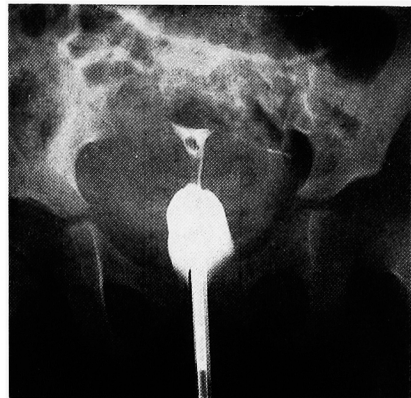


Fig. 4. 頸管および腔造影.

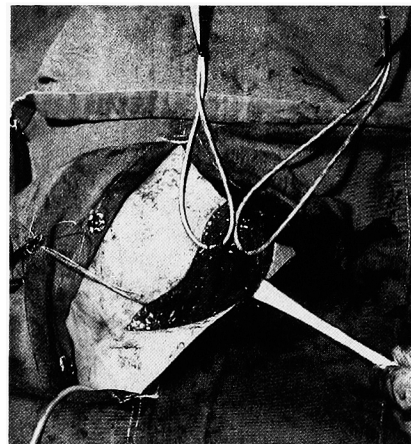


Fig. 5. 手術所見—大小2本の尿管を認める.

は可能であった。同年8月23日、長野県須立坂病院小児科受診、IVPにて左上腎杯の異常を指摘され同院泌尿器科を給介された。

現症：身長88 cm、体重13 kgといずれも年齢相応で、胸腹部理学所見にも異常は認められなかった。外陰部は視診上正常であるが、腔口と思われる部分へゾンデを挿入できず。外陰部観察時、尿道口と思われ



Fig. 6. 術中造影—腔壁内を下走し、腔末端付近で腔に開口する尿管を認める。

る孔から尿漏出を見た。陰核の肥大はない。

臨床検査成績：検尿；蛋白（－），潜血（－），沈渣赤血球（－），白血球（－）。血液一般・生化学：RBC 468万/mm³，WBC 7,900/mm³，Hb 12.8 g/dl，Ht 42%，Plt 34.7万/mm³，TP 7.2 g/dl，Alb 4.3 g/dl，A/G 1.9，GOT 36 IU，GPT 15 IU，LDH 601 IU，BUN 16 mg/dl，Cr 0.4 mg/dl，いずれも年齢相応の正常値であった。

内視鏡およびレ線検査：1) DIP (Fig. 1) では両側重複腎盂で左上位腎盂の水腎形成が認められた。なお完全重複尿管であるが否かは判断できなかった。2) 膀胱鏡では右側に2個，左側に1個の尿管口を認めた。3) 尿道鏡では外尿道口より1～2 cm 近位，6

時方向に Fig. 2A, B のとき箇所があり，同部へ尿道鏡を挿入したところ腔および子宮腔部を視認できた (Fig. 3)。しかしながら異所尿管口は確認できなかった。4) 子宮頸管および腔造影 (Fig. 4) では卵管まで造影されたが異所尿管への逆流は認められなかった。

手術および経過 以上より開口部位は不明であるが両側重複腎盂尿管，左上位腎からの尿管異所開口，さらに腔尿道開口（共通尿生殖洞）と診断し手術を施行した。左下位尿管は正常であったが，並行して走る上位尿管は径約 10 mm と拡張し (Fig. 5)，その末端は腔壁に進入していた。同尿管からの造影にて尿管は腔壁内を下走し，腔尿道合流部付近へ開口していることが判明した (Fig. 6)。同尿管を腔壁進入部位で結紮切断し膀胱へ新吻合した。術後尿失禁は消失した。

考 察

一般に尿道と腔が合したものを共通生殖洞 (common urogenital sinus) あるいは単に urogenital sinus) と称すが，Williams¹⁾ によれば Fig. 7 のごとく5型に分類される。Aは副腎性器症候群などに伴う半陰陽のシェーマであるが，自験例の場合，i) 陰核の肥大がないこと，ii) 暦年齢相応の身長であること，iii) 陰毛が発生していないことよりAは合致しないと考えられる²⁾。ただ例外的に生下時性器の異常がまったくないにもかかわらず幼児期後半～思春期になって陰核肥大，多毛の出現を見ることもあり今後 follow が必要かと考えられる²⁾。また胎生期に黄体ホル

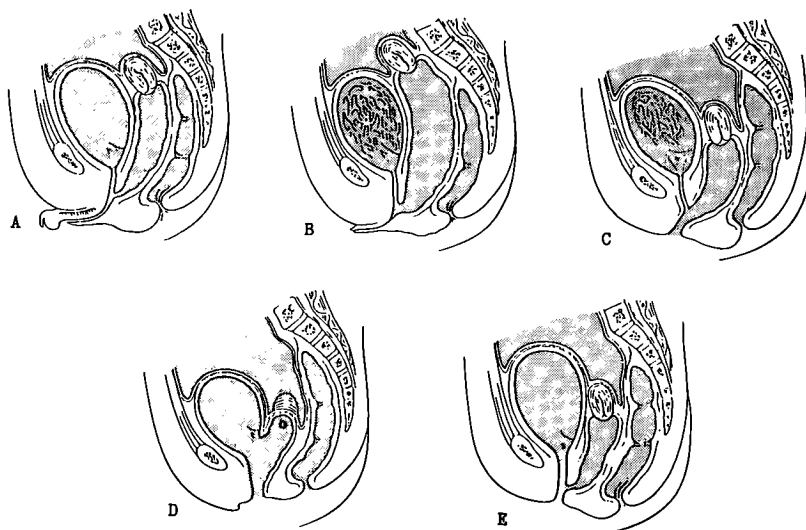


Fig. 7. Common urogenital sinus の5型 (Williams).

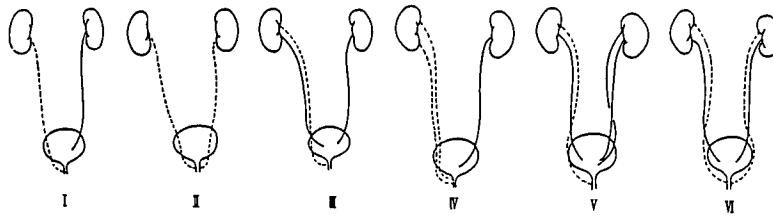


Fig. 3. Thom's classification.

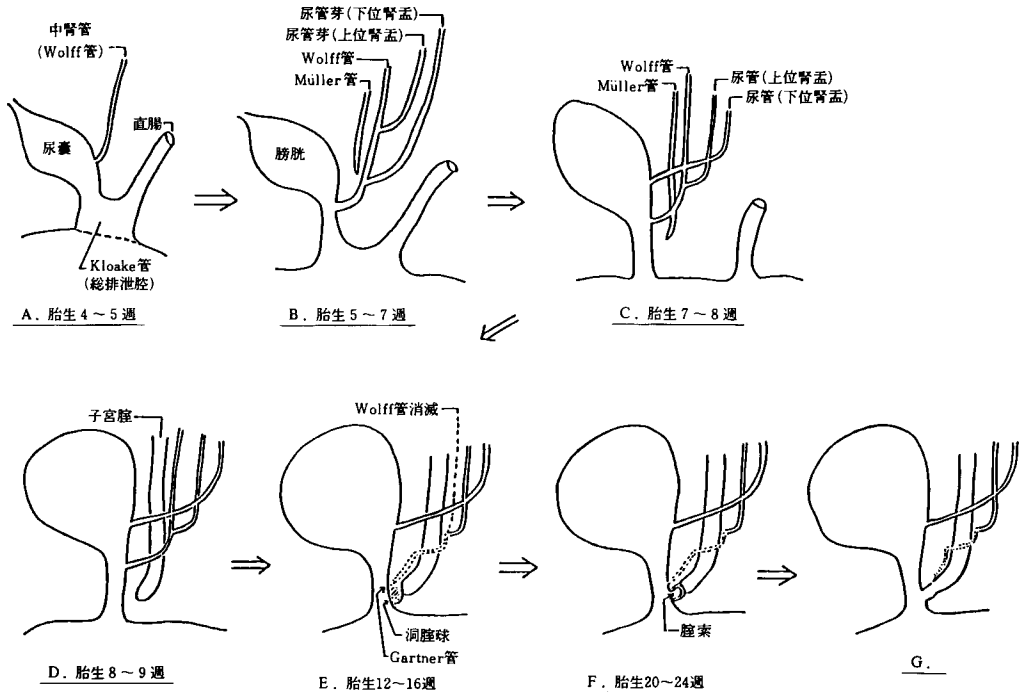


Fig. 9. 発生.

モン製剤の服用の既往がないことから hormone induced female intersex も否定される³⁾. Fig. 7B は陰唇の完全癒合によりその先端が陰茎の先端のように見えるもの, Fig. 7C は女子尿道下裂, Fig. 7D は膀胱頸部が存在しないものでいずれも自験例とは形態的に一致しない. Fig. 7E は陰末端が閉鎖し尿道へ開口するタイプのものであるが, 自験例と合致すると考えられる.

一方, 尿管異所開口は Thom の分類⁴⁾ が広く用いられ Fig. 8 のごとく 6 型に分類される. 自験例の場合両側の重複腎盂尿管で一方の上位尿管異所開口の V 型である.

Fig. 9 は自験例の発生原理を考察したものである. 胎生 4~5 週で中腎管 (後の Wolff 管) が形成され (Fig. 9A), 5~7 週で Wolff 管から尿管芽が発生し

後腎に向かって上行する⁵⁾. 自験例の場合重複尿管があるので Fig. 9B のごとく 2 本の尿管芽が発生する. 同じ頃 Müller 管が発生し下方へ延伸する. その後尿管芽の Wolff 管付着部位が移動を開始し下位尿管は膀胱内に開口部を移すが, 上位尿管の発生位置が異常に高位であった場合または移動開始が遅れた場合, Wolff 管内に取り残される形となる^{6,7)} (Fig. 9C). 8~9 週にはさらに下方へ伸展してきた Müller 管が左右合して子宮腔管の形成が始まる (Fig. 9D). 12~16 週では Wolff 管は上方から退行を開始し, 末端部分が Gartner 管と名称が変わる. Müller 管が尿生殖洞粘膜に接する部に洞腔球が発生する (Fig. 9E). 20~40 週では上位尿管は Gartner 管に連続する形となり^{5,8)}, その Gartner 管は腔壁の中へ取り込まれる. 洞腔球は (i) 腔索となり腔の下 1/3 を形成し

Table 1. 性別頻度.

	鈴木ら (1975) (No.1~435)	No.434~648	計 (No.1~648)
男	22	60	82
女	411	150	561
男女比	1 : 18.7	1 : 2.5	1 : 6.8

Table 2. 開口部位.

	男	女
腔		324
腔 前 庭		84
尿 道	25	67
膀 胱 頸 部	5	23
Gartner氏 腺		12
子宮・子宮頸部		4
外 尿 道 口		1
精 射 精 囊	35	
精 管	6	
精 管	6	
腎 部	1	

Table 3. 合併症.

患 側 発 育 不 全 腎	278	膀 胱 欠 損	1
腎 無 形 成	20	尿 道 憩 室	2
囊 胞 腎	11		
骨 盤 腎	9	鎖 骨 分 脊 肛 椎	1
交叉性腎変位	5	患 側 精 管 欠 損	1
回 転 異 常 腎	4	Klinefelter 症 候 群	1
対 側 腎 無 形 成	3		
回 転 異 常 腎	1	腔 中 隔	12
		双 角 子 宮	11
3 重 尿 管	5	子 宮 発 育 不 全	3
異所尿管結石・異物	3	重 複 子 宮	1
対 側 巨 大 尿 管	3	弓 底 子 宮	1
4 重 尿 管	1	尿 管 子 宮 瘻 室	1
逆 Y 尿 管	1	腔 憩 室	1
		共通尿管洞(自験例)	1

ながら、(ii) 尾方移動を開始し尿道から腔を分離させるように働く⁹⁾。ところが自験例の場合、何らかの理由で前記(ii)が障害され尿道から腔が分離できなかったものと考えられる。一方、異所尿管の開口部位で最も頻度の高い箇所は腔であるが、これは腔壁内を走る Gartner 管が内腔に貯留する尿の圧によって破れるからと考えられており^{7, 8)}。自験例も Fig. 9G のごとく腔末端部付近で腔に開口したものと考えられる。

尿管異所開口はこれまで奥山¹⁰⁾、沼里¹¹⁾、鈴木¹²⁾が本邦例について詳細な報告をしているが、今回われわれ鈴木以降の214例を加え計648例について統計的観察を行ってみた。

i) 分類 Thom 分類が一般的であるが、単一尿管異所開口のⅠ型が65%、一側重複尿管の上位尿管異所開口のⅢ型が22.6%であった。以下Ⅴ型(自験例)4.0%、Ⅱ型Ⅳ型各1.6%、Ⅳ型1.3%であった。しかるに欧米の報告^{13, 14)}によればⅢ型が過半数を占め人種

的な相違が指摘されている。

ii) 性差 (Table 1) 男女比は1975年¹²⁾の時点で1 : 18.7と圧倒的に女子例が多く報告されていたが、近年男子例の報告が急増し、現在では1 : 6.8となった。しかも鈴木以降の214例に限れば1 : 2.5であり剖検例も含めた欧米での男女比^{13, 15)}とおおむね一致した。本邦における診断技術の進歩を示すものと思われる。

iii) 開口部位 (Table 2) 女子では腔、腔前庭、尿道、膀胱頸部の順に多く、男子では精囊、尿道に多くみられた。

iv) 合併症・合併奇形 (Table 3) Thom 分類Ⅰ型の多くが患側腎の發育不全または無形成をきたしており298例46%を占めている。これは中腎管(後の Wolff 管)から発生する尿管芽の位置異常のため、後腎組織(後の腎)が正常に形成されないためと解釈される。一方、尿路系と生殖系はともに中杯葉由来であり、一方に奇形が存在すれば他方にも奇形が合併しやすくなると考えられる。婦人科関連の合併奇形としては腔中隔、双角子宮以下自験例まで計31例、女子例に対する頻度5.5%でみられた。しかし女子例の場合大多数が幼小児期の発見であり婦人科的検索を充分に行えないことを考慮すればこれをはるかに上回る頻度で合併奇形が存在すると推定され、したがって本症女兒の場合将来にわたって婦人科的異常の検索を進めることが肝要と考えられる。

治療法は外科的方法しかないが腎機能の程度により腎摘、半腎摘、尿管膀胱新吻合などさまざまである。自験例は所属していた上位腎機能が充分残存していたため尿管膀胱新吻合を行った。

自験例の場合上記手術にて尿失禁は消失せしめ得たが、i) 腔壁内に残る Gartner 管および腔内に尿道から尿が流入し尿路感染の focus になる危険性、ii) 腔形成術の方法および施行時期の2点が今後の課題である。

結 語

両側重複腎盂尿管、一側上位尿管腔開口に共通尿管洞を伴った3歳女子例を報告し、あわせて本例についての発生学的考察、尿管異所開口についての統計的観察を行った。

なお本論文の要旨は第334回日本泌尿器科学会北陸地方会に於て発表した。

文 献

- 1) Williams DI: Female anomalies and obstructions. Paediatric Urology, Williams, D.I.

- and Johnston, J.H., 2nd edition, pp.280-283, Butterworth and Co Ltd., London, 1982
- 2) 川戸英彦: 副腎性器症候群, 現代小児科学大系, 遠城寺宗徳, 初版 4 11-B, pp. 200-201, 中山書店, 東京, 1969
 - 3) 中島博徳, 倉持正昭: 性腺疾患, 現代小児科学大系, 遠城寺宗徳, 初版, 11-B, pp. 402-403, 中山書店, 東京, 1969
 - 4) Thom B: Harnleiter und Niereverdoppelung mit besonderer Berücksichtigung de extravasikalen Harnleiter Mundungen. Zeitschr. Urol 22: 417-468, 1928
 - 5) Wesson MB: Incontinence of vesical and renal origin. J Urol 32: 141, 1934
 - 6) Perlmutter AD, Retic AB and Bauer SB: Anomalies of the ureter. Campbell's Urology, Cann, C., 5th edition, vol 2, pp. 1713-1739, W.B. Saunders Company, Philadelphia, 1986
 - 7) 柿崎 勉: 尿管の奇形, 市川篤二, 楠 隆光, 落合京一郎, 初版, 2-I, pp. 51-62, 金原出版, 南江堂, 東京, 1960
 - 8) Meads AM: Ectopic ureter. J Urol 59: 390, 1948
 - 9) 副島秀久, 福本裕二, 山本敏広, 前原昭仁, 池上奎一, 坂田鼎三: 急性腹症と排尿困難を来した泌尿生殖洞異常の 1 例. 臨泌 40: 157-159, 1986
 - 10) 奥山明彦, 永野俊介, 高羽 津, 生駒文彦: 尿管異所性開口. 泌尿紀要 18: 319-325, 1972
 - 11) 沼里 進, 佐々木秀平, 久保 隆, 大堀 勉: 発育不全腎を伴った尿管異常開口の 1 例. 泌尿紀要 18: 794-801, 1972
 - 12) 鈴木良二: 尿管異所開口の 3 例. 泌尿紀要 22: 473-481, 1976
 - 13) Ellerker A: The extravasical ectopic ureter. Br J Surg 45: 344, 1958
 - 14) Burford CE, Grenn JE and Burvord EH: Ureteral ectopia, J Urol 62: 211, 1949
 - 15) Allansmith R: Ectopic ureter termination in seminal vesicle. J Urol 80: 425, 1959
- (1987年2月26日受付)