

尿道上裂の2例

広島大学医学部泌尿器科学教室（主任：仁平寛已教授）

田	戸	治
松	木	暁
福	重	満
仁	平	寛
		巳

EPISPADIAS OF THE URETHRA: REPORT OF TWO CASES

Osamu TADO, Satoru MATSUKI,

Mitsuru FUKUSHIGE and Hiromi NIHIRA

*From the Department of Urology, Hiroshima University Medical School, Hiroshima, Japan**(Chairman: Prof. H. Nihira, M. D.)*

Two cases of epispadias of the urethra were reported.

A 16-year-old girl was seen with partial defect of the anterior wall of urethra accompanied with anomalous location of the umbilicus, separated clitoris and diastasis of the symphysis pubis.

A 22-year-old man was also seen with penile type of epispadias.

Treatment done for them were described and a discussion was made with review of literature.

緒 言

Campbell¹⁾によれば尿道上裂を尿道前壁の欠損をもって定義しているが、本邦における尿道上裂は1917年佐藤²⁾の尿道亀頭上裂の1例報告にはじまる。一般に泌尿器科領域における奇形の中でも尿道上裂は最もまれなものとされており、とくに女子においてはさらにまれなものである。今回われわれは男子および女子の尿道上裂各1例を経験したのでこれらの症例を報告する。

症 例

症例1：16才の女子。

初 診：1970年11月14日。

主 訴：部分的尿失禁、外陰部奇形および臍の位置異常。

家族歴：患者は同胞2人中の第2子で、同胞に先天性異常または遺伝性疾患をみない。父母、祖父母は血族結婚ではない。

既往歴：本疾患以外に特記すべきものはなく、学歴は中学卒業で成績は中程度であった。

現病歴：母親は妊娠中に風疹など特殊な疾患の罹患、ホルモン剤などの薬物内服の既往はなく妊娠経過は順調で満期正常分娩であった。生下時いろいろ外陰部異常に気づき、某大学病院小児科を受診したが成長してから治療を受けるようにいわれた。現在は正常の排尿は可能でときに軽度の腹圧性尿失禁があり、外陰部成形術を希望して当科を受診、入院した。

現 症：体格、栄養中程度で頭部、顔面、頸部および四肢に異常は認められず、胸部は聴打診上に異常所見を認めない。腹部は平坦でやわらかいが臍を認めず、恥骨上部の腹壁には触診にて筋層の一部欠損があり、恥骨部はやわらかく陥凹して恥骨結合を触知せず、この部分は陰毛の発毛がなく直径約3cmのやわらかい皮膚隆起物があって、これが臍と考えられる(Fig. 1)。外陰部は上述のごとく陰毛は恥骨部で離開した発毛状態で、陰核および小陰唇の分離を認め、外尿道口は尿道前壁に一部欠損があって卵円形をなし尿道後壁の粘膜の一部がみられる。外尿道口のすぐ下に

直径約 2 cm, ほぼ円形の陰開口部と内部に陰粘膜の一部を認める。

検査成績

血液検査：赤血球数 404×10^4 , 血色素量 12.4 g/dl, ヘマトクリット 37%, 白血球数 10,100.

血清生化学的検査：総蛋白 7.0 g/dl, A/G 1.7, 総ビリルビン 0.7 mg/dl, BUN 15 mg/dl, クレアチニン 1.0 mg/dl, GOT 19 u.M., GPT 9 u.K., 血清電解質は Na 140 mEq/L, K 3.9 mEq/L, Cl 104 mEq/L.

尿中ステロイド排泄量：17-KS 9.7 mg/day, 17-OHCS 6.8 mg/day.

尿検査：水様透明, 蛋白(-), 糖(-), 沈渣異常所見なし. 尿の細菌培養検査ではとくに感染を認めない.

腎機能検査：PSP 試験は15分値36%, 120分値合計71%, Fischberg 濃縮試験は最高比重 1.039, レノグラム検査は正常波形を示した.

梅毒血清反応は陰性, ECG および肺機能検査は正常, 婦人科受診で内生殖器に異常なく, 性染色体検査で異常所見は認められない.

X線検査：単純撮影にて胸腹部の骨格系に異常はないが, 恥骨結合部は約 11 cm にわたる離開を認める (Fig. 2). 排泄性腎盂撮影法では異常所見は認めず (Fig. 3), 造影剤約 200 ml 注入による膀胱撮影では膀胱の形態は正常で, 膀胱尿管逆流現象などの異常所見はみられない (Fig. 4).

治療および経過

治療は患者の希望もあって臍形成術のみにとどめた (Fig. 5).

症例 2：21才の男子.

初診：1971年 3月 8日.

主訴：陰茎の変形.

家族歴：患者は2人兄弟の第1子で, 同胞に先天性異常または遺伝性疾患をみない. 父母および祖父母は血族結婚ではない.

既往歴：陰茎の奇形以外は特記すべき疾患の既往はない.

現病歴：母親の妊娠中に風疹などの罹患, あるいはホルモン剤などの薬物内服の既往はなく, 妊娠経過は順調で満期正常分娩であった. 生下時より陰茎および外尿道口の変形に気づき, 4才のときに手術を受けているが詳細は不明で, 術後の改善も認められずにそのまま放置していた. そのご全身の発育は正常で尿失禁は伴わなかったが, 立位で排尿したとき尿線は散乱し衣類をぬらすので, 1971年 3月 22日尿道形成術の目的で当科に入院した.

現症：栄養, 体格中程度, 皮膚は正常色で眼球結

膜に貧血, 黄疸は認めず咽頭も正常である. 胸部は打聴診上異常を認めず, 腹部は平坦で肝, 脾は触知せず, 圧痛も認めないが, 右腎は下極を触れ圧痛はない. そのほか上下肢に異常所見を認めない.

恥毛の発毛状態は正常の発育を示しているが下腹部正中線上で恥毛を一部欠き, 同部に手術瘢痕を認めたが筋肉の欠損は認められなかった. 陰茎はやや扁平で根部では陰茎海绵体が分離して幅広く (Fig. 6), 頭側方向にそりかえっている (Fig. 7). 外尿道口は亀頭部冠状溝に近い陰茎背面に漏斗状の深い外尿道口として開口しており, これより亀頭先端までは溝状に陥凹した辺縁に丸みをおびた尿道裂溝となっている (Fig. 8). 陰囊, 陰囊内容および会陰部は視, 触診上異常なく, 直腸内触診で前立腺は正常の大きさで異常所見を認めない.

検査成績

血液検査：赤血球数 550×10^4 , 血色素量 15.6 g/dl, ヘマトクリット 42%, 白血球数 6,900.

血清生化学的検査：総蛋白 6.3 g/dl, 総コレステロール 141 mg/dl, GOT 15 u.M., GPT 6 u.K., BUN 20 mg/dl, クレアチニン 1.8 mg/dl, 血清電解質は Na 139 mEq/L, K 3.5 mEq/L, Cl 106 mEq/L.

尿中ステロイド排泄量：17-KS 8.1 mg/day, 17-OHCS 3.2 mg/day.

尿検査：淡黄色透明, 蛋白(-), 糖(-), 沈渣に異常所見を認めない. 尿の一般細菌培養は陰性.

腎機能検査：PSP 試験15分値47%, 120分値合計85%, Fischberg 濃縮試験, 最高比重 1.038.

梅毒血清反応：陰性

ECG, 肺機能検査にて異常所見を認めず. 性染色体検査は正常であった.

X線検査：単純撮影では胸腹部の骨格系には異常はないが, 恥骨結合は不規則で, 恥骨枝は左右非対称的の形態を示す (Fig. 9). 排泄性腎盂撮影法では異常所見はなく (Fig. 10), 膀胱尿道撮影像で後部尿道に拡張はみられなかった (Fig. 11).

手術および経過

硬膜外麻酔下になまず会陰部尿道瘻を造設して bag-catheter を膀胱内に留置して尿流変向をおこない, ついで陰茎根部背側皮膚に約 2 cm の横切開を加え, これをタテに縫合して陰茎の背側牽引を修正した. つぎに陰茎背側に開口する外尿道口の周囲に, これをかこむごとく皮膚切開を加え尿道壁と海绵体白膜の間を鋭的に剥離し, 陰茎腹面で亀頭直下に約 1 cm の切開を加えこの部に尿道をひきだし, 尿道前壁と陰茎皮膚とを直接縫合して外尿道口を形成した. 左右海绵体白

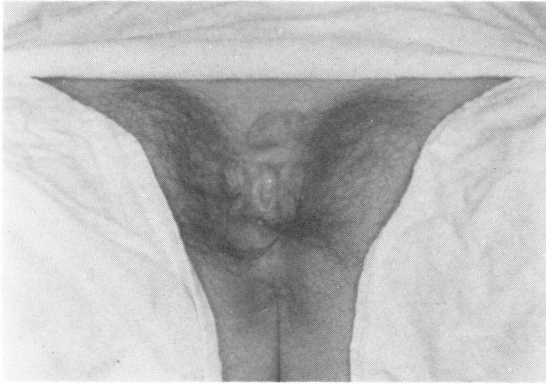


Fig. 1. 症例1の外陰部所見. 陰毛は恥骨部で分離した発毛状態で, その中央部に上から位置異常を呈した膺, 外尿道口および卵円形の陰開口部を認め, これらの両側に分離した陰核および陰唇を認める.

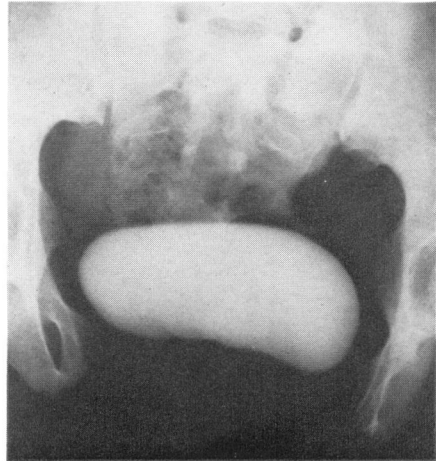


Fig. 4. 症例1の膀胱撮影. 膀胱の形態は正常で, 膀胱尿管逆流現象は認められない.

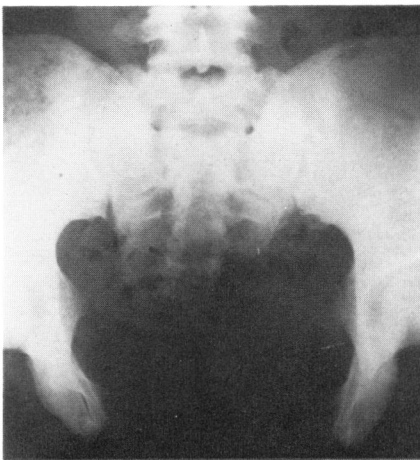


Fig. 2. 症例1の骨盤部単純撮影. 恥骨結合部の離開を認める.

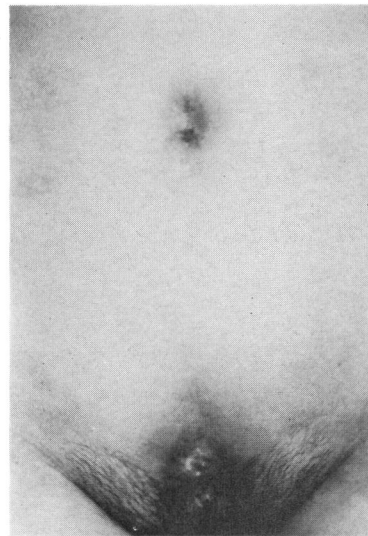


Fig. 5. 症例1の膺形成術後.

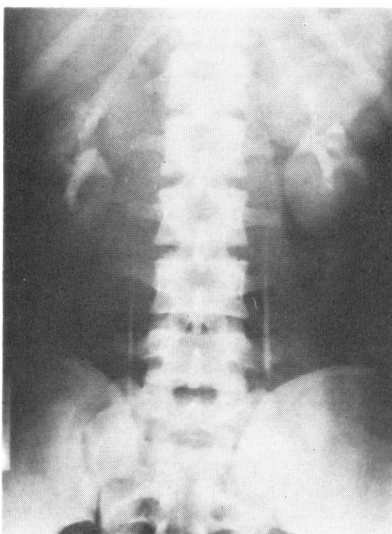


Fig. 3. 症例1の排泄性腎盂撮影. 上部尿路に異常所見は認められない.

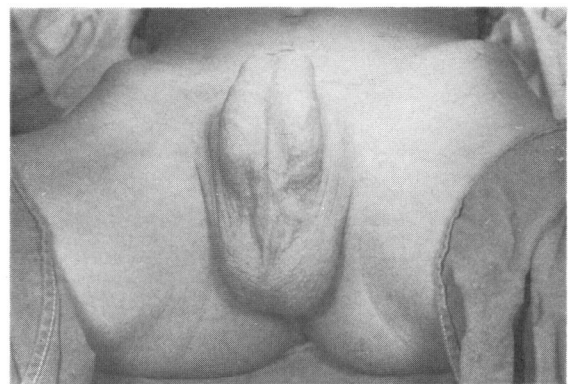


Fig. 6. 症例2の外陰部所見. 陰茎はやや扁平で, 根部では陰茎海绵体が分離して幅が広い.



Fig. 7. 症例2の外陰部所見. 陰茎が頭側方向にそりかえっている.



Fig. 10. 症例2の排泄性腎盂撮影. 上部尿路に異常所見を認めない.



Fig. 8. 症例2の外尿道口部所見. 外尿道口は亀頭部冠状溝より陰茎背面に漏斗状に開口している.



Fig. 11. 症例2の尿道膀胱撮影. 後部尿道に拡張は認められない.

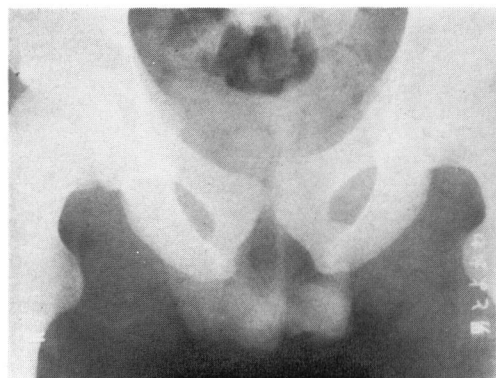


Fig. 9. 症例2の骨盤部単純撮影. 恥骨結合は不規則でやや離開を示す.

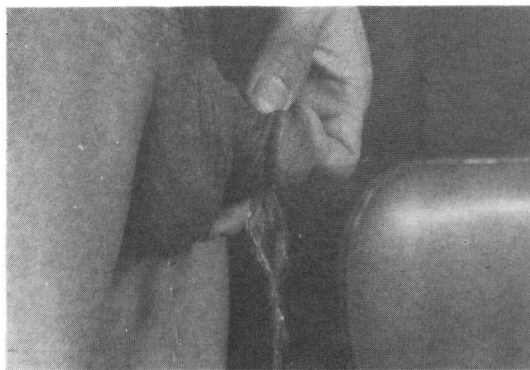


Fig. 12. 症例2の術後の排尿状態.

膜を背面で縫合し、その上に皮膚縫合をおこない手術を終了した。術後は陰茎背面の以前の尿道開口部位に一時的な小瘻孔を生じたが、排尿状態はほぼ正常に改善された (Fig. 12)。

考 按

本邦における尿道上裂は東福寺ら¹⁹⁾の集計に自験例を入れ30例に達しているが、女子尿道上裂は森田ら

(1965)²⁰⁾、高井ら(1967)⁴⁾の報告のみで、自験例を入れても3例に過ぎずきわめてまれな疾患である (Table 1)。

頻度および性別 本症の発生頻度は Campbell¹⁾によれば臨床的には3万人に1人の割合でみられるといい、Dees²⁾は米州8大病院入院患者5,292,212人中本症患者は男45例、女11例、合計56例と報告している。性別では Gross ら⁶⁾は5対1と男性に多いと報告し

Table 1. 本邦尿道上裂症例

No.	報 告 者	報告年次	年齢	性	病 型	尿失禁	治 療 法	合併奇形	転 帰
1	佐藤	1917	27	男	亀頭上裂	—	Diffenbach 法	亀頭分裂	治
2	岡安	1924	25	男	陰茎上裂	—	Diffenbach 法	右停留睪丸	治
3	二宮・池上	1935	6	男	陰茎/陰茎恥骨型移行	+	Duplay法で尿道形成 Thirsch法で亀頭形成	前立腺欠損	尿失禁治癒
4	加納・柳谷	1940	25	男	陰茎上裂	—	Diffenbach 法	—	治 癒
5	小田原	1944	60	男	亀頭上裂	—	手術 (—)	恥骨離開	不 変
6	河田	1954	4	男	陰茎上裂	+	Coffey-Mayo 法 (尿管、腸吻合術)	—	治 癒
7	柿崎・古谷	1955	?	?	?	?	?	?	?
8	山際・大越	1956	19	男	陰茎恥骨上裂移行	—	Gross & Gresson 法 (Cantwell 変法)	恥骨離開	立位排尿可能
9	三浦	1957	?	男	陰茎上裂	+	Thiersch 法	—	治 癒
10	田尻・松本	1958	14	男	亀頭上裂	+	尿道瘻閉鎖	陰囊奇形	一部治癒
11	植松・石沢	1959	?	男	陰茎恥骨型	+	?	重複陰茎	?
12	井上・岩佐	1959	1	男	全尿道上裂	+	尿管S状結腸吻合術	膀胱外反症	治 癒
13	林・糸井	1959	5	男	陰茎恥骨型	+	Young 変法	両側睪丸發育不全	夜間尿失禁 (+)
14	檜原・緒方	1959	7	男	陰茎恥骨型	+	Young 法	—	尿失禁解消
15	市川・ほか	1961	20	男	陰茎上裂	+	Young 法	恥骨離開	治 癒
16	名和田・ほか	1961	11	男	陰茎上裂	+	Young 法	—	治 癒
17	三矢・ほか	1962	20	男	亀頭上裂?	+	陰茎形成・瘻孔閉鎖	—	治 癒
18	野中・小口	1963	13	男	陰茎/陰茎恥骨型移行	+	Young 法	後部尿道拡張	治 癒
19	永原	1964	5	男	陰茎上裂	—	Young 法	—	治 癒
20	中川・ほか	1964	17	男	完全陰茎恥骨型	+	Duplay 法	—	?
21	河崎屋・ほか	1965	25	男	陰茎上裂	—	Cantwell 法	—	?
22	森田・ほか	1965	2	女	尿道前壁一部欠損	+	尿道外陰形成両腸骨外板骨切術、恥骨結合癒合術	恥骨離開 陰核/陰唇分離	尿失禁解消
23	百瀬・ほか	1965	11	男	陰茎上裂	—	Young 変法	恥骨離開	二次手術で治癒
24	田平・ほか	1965	20	男	陰茎上裂	+	Swenson 法	—	治 癒
25	渡辺・ほか	1967	12	男	陰茎上裂	—	Young 法	後部尿道拡張	治 癒
26	重松・増田	1967	12	男	陰茎上裂	—	Gross 法	恥骨離開	治 癒
27	高井・ほか	1967	2	女	尿道前壁一部欠損	+	両側腸骨外板骨切術 恥骨結合癒合術 尿道外陰部形成術	恥骨離開 陰核/陰唇分離	治 癒
28	東福寺・ほか	1969	4	男	陰茎上裂	—	Young 法	—	治 癒
29	自 験 例	1972	16	女	尿道前壁一部欠損	+	臍形成術	臍の位置異常、 陰核および陰唇分離、恥骨離開	臍形成術のみ
30	自 験 例	1972	22	男	陰茎上裂	—	Young 変法	不規則の恥骨結合	治 癒

ているが、Campbell⁷⁾は自験例15例中男子8例、女子7例と男女間に大差はないと述べている。しかし男子に圧倒的に多くみられる文献が多く、本邦例においても30例中女子は3例と男女比は10対1の割合に男子が圧倒的に多くなっている。

分類 男子尿道上裂はその程度により亀頭型 balanic type、陰茎型 penile type および陰茎恥骨型（または完全型）penopubic type の三型に分類されているが、一般に最も軽度の亀頭型は比較的少なくて完全型が最も多いとされている。Campbell の8例中、陰茎型1例、完全型7例となり、Gross & Gresson は男子15例中亀頭型3例、陰茎型4例、完全型11例と報告している。しかし本邦男子26例中記載の明らかな例では亀頭型4例、陰茎型14例で、陰茎恥骨型は陰茎と陰茎恥骨の移行型3例を含めて8例になり Campbell, Gross らの報告に比べて、陰茎型が約半数を占めている。われわれの症例も恥骨結合の軽度の離開、外尿道口の陰茎背部開口、陰茎は短小、扁平で背側に屈曲していることなどから陰茎型と考えている。

女子尿道上裂は Stiles⁸⁾によれば3群に分類され、遠位尿道前壁の一部欠損あるものを1群、尿道前壁全域の欠損があるものを2群、恥骨結合の離開、尿道より膀胱に至る全域に欠損を有し膀胱外反症を呈するものを3群としている。Gross も Stiles とほぼ同様の分類をしており、2群では膀胱頸部に欠損がなく尿失禁を伴わないとし、3群で尿失禁を伴い膀胱頸部欠損の高度の場合は膀胱脱が見られるとしている⁶⁾。Möbius は尿失禁を伴うものと伴わない真性尿道上裂を合せて第1群、恥骨結合離開を伴う尿道上裂を第2群、膀胱外反症および腹壁欠損を伴うものを第3群として分類している。Engelking¹⁰⁾は4度に分類し、陰唇、陰核の分離のみのものを第1度、第2度はこれに尿道前壁の一部欠損を伴うもの、第3度は尿道全域欠損、膀胱括約筋欠損の加わったもので尿失禁を有するもの、第4度は膀胱外反症と尿道上裂を伴ったものに分類している。これらの分類に従えば自験例は Stiles の第1群、Möbius の第2群、Gross の第2群、Engelking の第2度に分類され、尿道上裂としては軽度のものと考えられる。

発生 Campbell は尿道上裂と膀胱外反症はしばしば合併し、膀胱外反症の軽度のものを尿道上裂と述べているが、両者の発生はともに胎生期障害に由来するもので、尿道上裂と膀胱外反症を一元的に説明するものとして発生学的立場から Patton と Barry (1952)¹¹⁾の説と、Marshall と Muecke (1962)¹²⁾の説が有力になっている。Patton と Barry は一対の生殖結節原

基が正常より尾側に発生するため、尿道は phallus の背面に出現するとしている。いっぽう Marshall と Muecke は Patton らの説に反対し、膀胱外反症も尿道上裂も胎生の初期6週目ごろに総排泄腔膜が過大発育するか、または予定の退縮をしなかった結果としている。

治療 尿道上裂における治療法は手術療法しかないといわれており、手術適応として Gross と Gresson は、1) 尿道上裂での尿失禁の除去、2) 男性では排尿、射精の正常化と陰茎の成形、3) 女性では外陰部の成形と尿道形成としている。また手術時期については2～3才では身体の発育が不十分のため、その発育程度により3～5才の間が適当であり、尿失禁のある場合は就学前におこなうとされている。高安ら¹³⁾は尿失禁のないかぎり思春期直前、尿失禁のある場合は4才以後のできるだけ早い時期に、辻¹⁴⁾は5～6才、野中ら¹⁵⁾は尿失禁に対して3～4才以後のできるだけ早い時期に、尿失禁のないものでも精神的劣等感をきたさないように思春期直前には尿道形成もおこなうのがよいとしている。

尿道上裂の尿道形成術は古くから種々の術式があり、1845年 Diffenbach が陰茎型症例に離開した尿道辺縁を創面として直接縫合し治療せしめたのに始まる。そのご Thiersch (1845)、Cantweel (1895)、Trendelenburg (1906)、Nové-Josserand and Cotte (1907)、Stiles (1911) などが手術療法を施行してきたが、1918年に Young が陰茎型尿道上裂に新手術法を発表していらい、こんにちでも Young 法として広く利用されている。また1952年に Gross & Gresson⁶⁾が陰茎型に対する手術法を発表している。

尿失禁に対する手術療法として Duplay (1880)、Boiffin (1895)、Trendelenburg (1906) などの術式があり、1922年 Young¹⁶⁾の double sphincter method、1937年その改良法が発表され尿失禁治療の成績が著しく向上してきた。女子尿道上裂に対する治療は尿失禁解消に重点がおかれており、Engelking¹⁰⁾、Stanley¹⁸⁾、Michalowski¹⁹⁾などの手術方法、さらに恥骨結合離開に対しては Shultz¹⁷⁾の腸骨外板骨切術があり、高井ら⁴⁾はこの術式で成功をおさめている。

結 語

16才女子で膈の位置異常、陰核および陰唇の分離、恥骨結合離開を伴う尿道前壁一部欠損型の症例と、22才男子で陰茎型の症例と計2例の尿道上裂症例を報告し、その治療経過とともに若干の文献的考察をおこなった。

本論文の要旨は第49回および第50回日本泌尿器科学会広島地方会において発表した。

文 献

- 1) Campbell, M. F. : Urology, Vol. 2, p. 1594, W. B. Saunders Co., Philadelphia, 1970.
- 2) 佐藤 仁 : 皮泌誌, **17** : 572, 1917.
- 3) 森田茂豊・ほか : 日泌尿会誌, **57** : 516, 1966.
- 4) 高井修道・ほか : 日泌尿会誌, **58** : 345, 1967.
- 5) Dees, J. E. : J. Urol., **62** : 513, 1952.
- 6) Gross, R. E. & Gresson, S. L. : J. Urol., **68** : 477, 1952.
- 7) Campbell, M. F. : J. Urol., **67** : 988, 1952.
- 8) Stiles, H. J. : Surg., Gynec. & Obst., **13** : 127, 1911.
- 9) Möbius, W. : Zbl. Gynäk., **83** : 645, 1961.
- 10) Engelking, R. L. et al. : J. Urol., **84** : 555, 1960.
- 11) Patton, B. W. & Barry, A. : Am. J. Anat., **90** : 35, 1952.
- 12) Marshall, V. F. & Muecke, F. C. : 高橋より引用. 臨泌, **25** : 525, 1971.
- 13) 高安久雄・ほか : 臨皮泌, **11** : 1291, 1957.
- 14) 辻 一郎 : 小児泌尿器科の臨床, **83**, 1962.
- 15) 野中 博・ほか : 手術, **17** : 634, 1963.
- 16) Young, H. H. : J. Urol., **7** : 1, 1922.
- 17) Shultz, W. G. : J. Urol., **79** : 453, 1955.
- 18) Stanley, K. E. et al. : J. Urol., **89** : 439, 1963.
- 19) Michalowski, E. et al. : Surg., Gynec. & Obst., **117** : 465, 1963.
- 20) 東福寺・ほか : 臨泌, **23** : 49, 1969.

(1972年4月24日受付)