

小児にみられた左卵巢奇形腫の膀胱穿孔例

大垣市民病院泌尿器科

長谷川 義 和

磯 貝 和 俊

AN INFANTILE CASE OF OVARIAN TERATOMA WITH
BLADDER PERFORATION

Yoshikazu HASEGAWA and Kazutoshi ISOGAI

From the Department of Urology, Ogaki City Hospital

(Chief: Dr. K. Isogai)

A 4-year-old girl was seen by our clinic with cloudiness of urine after severe abdominal pain. Intermittent pyuria was confirmed by urine examination for 20 days. Cytoscopically, thumb's head sized tumor was observed at the dome of the bladder. A malignant tumor was suspected and an operation was performed. The left ovarian abscess was adhesive to the bladder wall with perforation into the bladder.

Histologically, no invasion of the ovarian teratoma was observed in the bladder wall except for inflammatory changes. Not only well developed epidermis, hairs and sweat glands but also smooth muscle and brain tissue were observed and diagnosis of benign ovarian teratoma was determined.

奇形腫とは3胚葉からできる諸組織が種々の分化程度において腫瘍化したものであるが、このうち成熟型の奇形腫は卵巣に最もよくみられ、単胞、単発性の嚢胞状を示すことが多く皮様嚢腫と呼ばれる。この合併症の中で非常に稀なものとして膀胱穿孔があるが、最近われわれは女兒において下腹部の激痛後、間歇的膿尿をきたした左卵巢皮様嚢腫の膀胱穿孔例を経験したので報告する。

症 例

患者：4歳 女子。

主訴：下腹部激痛後の強度の尿混濁。

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：1979年4月8日午後より下腹部の激痛を訴えたため、当院小児科を受診したがそのときは症状が軽快してきたため、とくに処置せずに帰宅した。翌日強度のミルクティー様尿混濁に母親が気付く、外尿道口付近の疼痛も強いとため某小児科を受診したところ尿所見で強度の膿尿を認めたため当科に紹介された。この間、発熱および頻尿、排尿時痛などは認めなかつ

た。諸検査の結果、膀胱腫瘍の疑いもあるため4月27日当科入院となった。

現症：体格中等度、發育栄養良好、身長105 cm、体重18 kg、体温36.6°C、脈拍92/min、血圧110/62 mmHg、胸部打聴診異常認めず。腹部は平坦軟で圧痛なし、腫瘤触知せず。肝腎脾触知せず。外性器の異常認めず。

尿所見：初診時尿は混濁が強く、沈査で白血球(++)、赤血球15~20/HPF、細菌(-)であったため、膀胱炎として3日間化学療法を行なった。3日後の早朝尿は初診時とほぼ同様の所見であったが、この日の来院時尿は正常所見を示していた。2週間後の尿所見には再び沈査で膿尿をみとめた。入院時尿所見は軽度混濁、白血球(+)赤血球(++), 細菌(-)であった。

血液学的検査：WBC 11000/mm³, RBC 459×10⁴/mm³, Hb 12.1 g/dl, Ht 37.1%, GOT 39 K-U, GPT 18 K-U, LDH 496 Wro-U, AIP 10.5 K-A-U, 総ビリルビン 0.4 mg/dl, creatinine 0.6 mg/dl, BUN 8.8 mg/dl, 総蛋白 7.6 g/dl, albumin 4.2 g/dl, 総コレステロール 181 mg/dl, A/G 1.24, Na 141 mEq/l, K 4.2 mEq/l, Cl 108 mEq/l, 出血時間 4'00'', 凝固時

間、開始 2'22'', 終了 34'33'', トロンボテスト93%, 血沈1時間値 30 mm, 2時間値 70 mm.

レ線検査: 腎膀胱部単純撮影; 異常石灰化像, 結石など認めず. 骨格の異常認めず.

排泄性腎盂造影: 右腎盂尿管に軽度の拡張を認めた (Fig. 1).

排尿時膀胱尿道造影: VUR は認めず. 膀胱充盈像において膀胱頂部付近に壁の不整像を認めたが, 陰影欠損はみられなかった (Fig. 2).

膀胱鏡所見: 膀胱容量 130 ml, 両側尿管口正常. 膀胱粘膜は全体的に軽度の充血が認められた. さらに頂部において拇指頭大で全体として浮腫状を呈し, 一部ビラン状変化を伴い表面粘膜が白っぽい平滑な広基性腫瘤を認めた. なお瘻孔, 毛髪, 結石および膿の排出などは認めなかった.

胸部単純撮影, 心電図には異常所見を認めなかった.

以上の所見より, 膀胱の悪性腫瘍の疑いも強く, 試験開腹の目的も兼ねて1979年5月1日に腫瘤の摘出術を施行した.

手術所見: 下腹部正中切開にて腹膜外的に膀胱に到達したところ, 膀胱頂部と強く癒着した鶏卵大腫瘤を腹腔内において正中よりやや右側で触知したため, 切開を臍を経て約 10 cm 延長し腹腔内より腫瘤を観察した. 腫瘤は左尿管と連続しており, 左卵巢腫瘍と判

明した. しかしながら膀胱とは頂部において癒着していたので膀胱部分切除術を併施すべくこの部を鋭的に剝離していったところ, 茎にあたる部位から膿の排出をみた. これは腫瘤内腔から膀胱内へと瘻孔が形成されていたためであり, ここを中心として膀胱壁は内腔に向かって炎症性に肥厚していた. 肥厚部の表面粘膜は浮腫状を呈し, 拇指頭大の丘状隆起をなしていた.

なお, 右卵巢, 右卵管, 子宮には異常なく, 腹腔内にも腫瘤の癒着, 穿孔など異常所見は認めなかったため, 左卵管を中央部において結紮切断し, 癒着部膀胱壁の部分切除を行なって腫瘤を膀胱壁とともに一塊として摘出した. ダグラス窩と腹膜外にゴムドレーンを留置し, 膀胱, 腹膜, 腹壁を型のごとく縫合し手術を終えた.

摘出標本肉眼的所見: $4.0 \times 3.5 \times 3.0$ cm, 重量 45 g, 表面平滑で灰白色を呈しほぼ球形をなし, 全体均一に弾性軟であった (Fig. 3). 剖面は多数の毛髪と白濁した膿により内腔が占められていたが, 歯牙, 結石などは認めなかった (Fig. 4).

組織学的所見: 卵巢内にはよく分化した表皮, 毛髪, 汗腺のほかにも中枢神経もみられ外胚葉成分が主体をなしていたが, 中胚葉成分である平滑筋も認められた. いずれもよく分化しており悪性変化はなく, 分化型奇形腫, すなわち皮様囊腫と診断された (Fig. 5). また, 膀胱壁との癒着部には好中球, リンパ球, 好酸

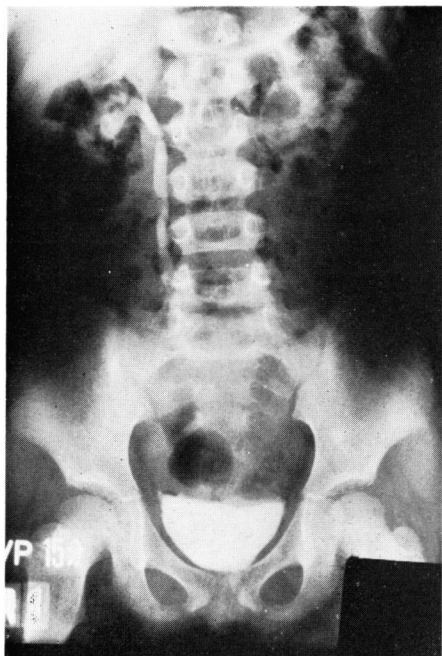


Fig. 1. 排泄性腎盂造影 (15分)

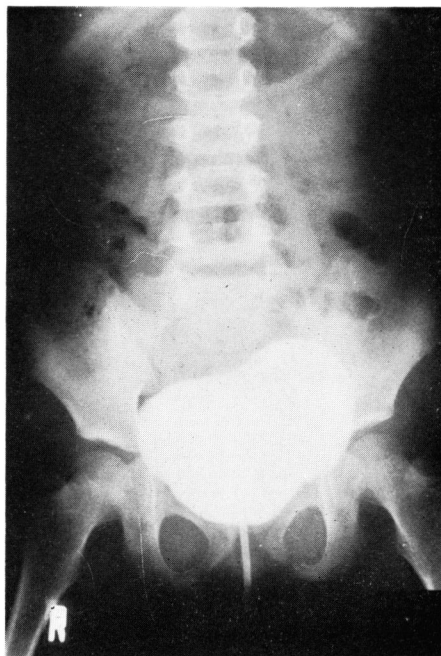


Fig. 2. 膀胱造影



Fig. 3. 摘出標本 (卵巢腫瘍)



Fig. 4. 腫瘍の剖面

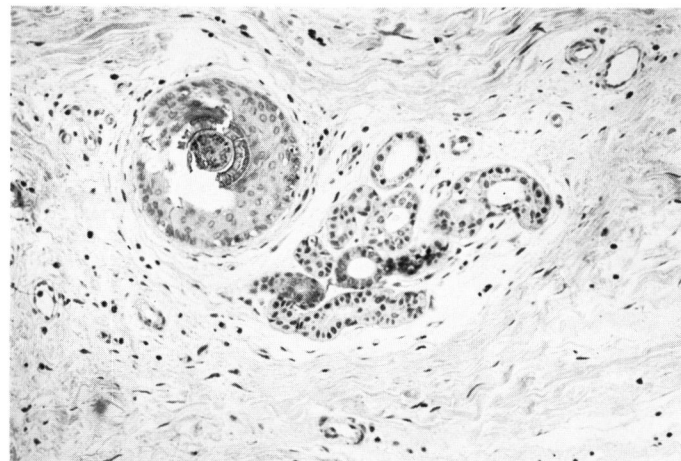


Fig. 5. 腫瘍の組織像

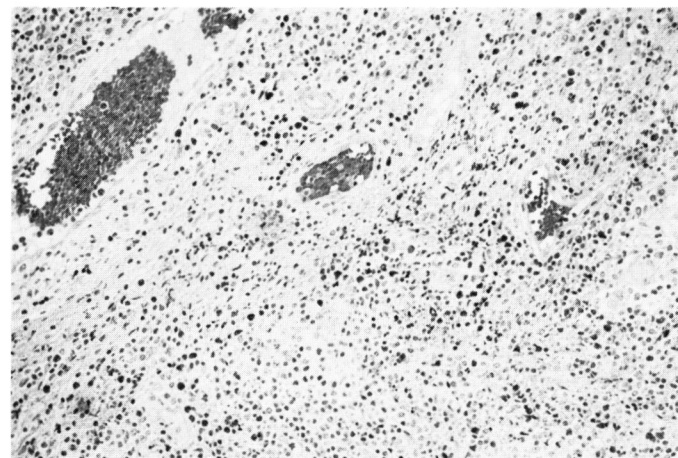


Fig. 6. 膀胱壁癒着部の組織像

球が浸潤し、毛細血管の拡張をみとめたが、これは炎症性変化によるもので、卵巣組織と膀胱壁との間に連続性はなく、したがって皮様嚢腫は侵襲ではなく膀胱への穿孔と考えられる所見を示した (Fig. 6).

術後は経過良好で膿尿も正常化し20日目に退院となり、現在外来にて経過観察中である。

考 察

皮様嚢腫はおもに卵巣に好発し卵巣腫瘍の10%以上を占めるが、まれに縦隔、卵管、直腸、睪丸、腹膜後腔、膀胱などに原発する。膀胱との関連において、本邦では1899年に松原ら¹⁾による14歳女子症例の初報告以降自験例も含め66例を収集したが、このうち原発性20例、続発性33例、不明13例であった。しかし、原発性か続発性かという点についてはこれまでも重大な関心がそがれ、片村ら²⁾は過去に原発性皮様嚢腫として報告された15例を再検討し、原発性と診断された根拠として、有茎性腫瘍であることと婦人科的双合診により異常を認めなかったという点が重要視されている事実から、膀胱高位切開だけでなく開腹して内性器との関係を調査すれば続発性皮様嚢腫の症例数がさらに増加するであろうと述べている。したがって、原発性とするには大北ら³⁾のいうように明らかに膀胱に限局しており、開腹の結果両側卵巣は正常であることを確認し、かつ摘出腫瘍のいずれの部分にも卵巣を思わせる組織像が全く見られないことを確認するべきであろう。しかし、現実にはすべての症例においてこれを確認することは難しく、土屋ら⁴⁾も指摘するように腫瘍の性質上その組織像から原発器官を推定することが困難で、最終的には剖検所見に拠らなければならない症例もあるが、一般的には開腹により腹腔内器官との関連を明らかにし、病理組織を詳細に検討することにより大部分は診断がつくものと思われる。

つぎに続発例のうち28例は卵巣を起源とし、4例が膀胱周囲組織および骨盤内組織で、1例が尿道由来であったが、このうち最も多い卵巣由来の続発性膀胱皮様嚢腫について金沢ら⁵⁾は卵巣皮様嚢腫の化膿が主因となり、腫瘍壁が膀胱に癒着し二次的に穿孔をきたす症例も従来は続発性の中に含まれていたが、厳密には卵巣皮様嚢腫が徐々に膀胱へ侵襲した場合のみを続発性とするべきであると強調している。われわれの症例は膀胱壁自体には卵巣由来の組織はなく、嚢孔を中心とした炎症性変化にとどまるものであり、臨床症状からみても徐々に膀胱へ侵襲した場合は、毛髪尿、頻尿、血尿、膿尿および結石、歯牙などの排出などがみとめられるが、本例では突然の下腹部激痛の翌日から

強い尿混濁、膿尿という急激な経過があり、金沢らも指摘するように症状の発現において明らかに異なり、穿孔例として区別する必要があると思われる。最近では徳原ら⁶⁾による41歳女性の報告があるが、この症例も腰痛、発熱に引きつづいて尿混濁をみとめている穿孔例である。

発現年齢では本例は4歳で本邦においては最年少と思われる。一般に卵巣皮様嚢腫は20歳代、30歳代の性成熟期婦人に好発するが、無症状で経過するものもあり、腫瘍の触知、茎捻転、感染、破裂、穿孔など何らかの合併症による自覚症状をきたしてから発見されたり、婦人科の診察の機会に偶然みつかることはあるが、本例のように幼児期において穿孔という合併症をきたしたために発見されることはきわめてまれであろう。

症状としては一般に毛髪尿、尿混濁、膿尿、血尿、頻尿、経石・歯牙などの排出、腰痛、腹痛、発熱などかなり多様であるが、腹腔内への破裂と異なり生命に対して重篤となるものはない。しかし、このなかで徐々に膀胱壁に侵襲した続発性皮様嚢腫と異なる特徴的な所見は、穿孔時に一致した腰腹部痛、発熱などの激しい症状を伴ったのち膀胱炎を思わせる尿所見を呈することである。

治療としては癒着部を含めた膀胱壁部分切除と腫瘍の摘出であるが、諸家も述べているように強い癒着を伴っているものでは必ずしも容易ではない。幸い本例は癒着が軽度であったため完治せしめえた。

結 語

4歳女児にみられた間歇的膿尿を伴う左卵巣奇形腫の膀胱穿孔例について報告した。腫瘍の大きさは4.0×3.5×3.0 cm、重量45 gで、組織学的には良く分化した表皮、毛髪、汗腺のほか中枢神経、平滑筋などもみられ分化型奇形腫であった。癒着部膀胱壁内に卵巣由来の組織はなく嚢孔を中心とした炎症性変化のみであるため、卵巣皮様嚢腫が徐々に膀胱壁に侵襲してきた続発性とは区別し穿孔例とした。突然の激しい腹痛のあとに強い尿混濁、膿尿をきたしたという特徴的臨床経過もその裏づけとなる。

本例は4歳の女児であり、本邦における膀胱と関連した皮様嚢腫のうちでは最年少と思われる。

本論文の要旨は日本泌尿器科学会第31回西日本総会にて発表した。御校閲を賜った恩師西浦常雄教授に感謝いたします。

文 献

- 1) 松原明三・ほか：東京医学会誌，**13**：325, 1899.
- 2) 片村永樹・ほか：泌尿紀要，**3**：742, 1957.
- 3) 大北健逸・ほか：臨床皮泌，**16**：19, 1962.
- 4) 土屋文雄・ほか：日泌尿会誌，**58**：1072, 1967.
- 5) 金沢 稔・ほか：臨床皮泌，**11**：191, 1957.
- 6) 徳原正洋・ほか：**39**：672, 1977.

(1980年12月12日受付)