

診 療

小児の陰唇癒着症

—成因並びに治療法に関する検討—

熊本大学医学部産科婦人科学教室 (主任: 前山昌男教授)

徳永 達也 福田 稔 前山 昌男

宮崎医科大学産科婦人科学教室 (主任: 森 憲正教授)

藤 崎 俊 一

Key words: Vulva・Fusion・Vitamin A・Estrogen

緒 言

小児の陰唇癒着症は比較的稀にみられる疾患で、成書にも詳細な記載は少ない。成因についても、先天異常や発育不全とするものから後天的発症とするもの迄の種々の説があり、詳細は明らかでない。また治療法についてみると、本邦での報告は外科的方法によるものが多く、一方欧米では estrogen 軟こうによる治療が一般的の様である。1974年、岩崎ら²⁾は、Huffman⁷⁾の記載に基づき、estrogen 軟こう塗布による治験を報告したが、今回我々もこれにならつて治療すると同時に、膣入口部 smear の Maturation Index(M.I.)により estrogen の局所効果を判定した。また、患児の既往症、妊娠時合併症、染色体分析等の成因に関する検討を行なつた。

対象ならびに方法

1972年9月より1977年3月迄に、熊本大学附属病院産婦人科を訪れた陰唇癒着症患者8例を対象とした。これらの症例で、母親の妊娠時合併症や薬物服用の有無、患児の家族歴や既往症、末梢白血球培養による染色体分析等の成因に関する検討を行なつた。治療は、1例のみが外科的に治療し、他の7例は estrogen 軟こうのみで治療した。Estrogen 軟こうは、estradiol dipropionate 0.5mgを白色ワセリン10gに混じ、原則として患児の就眠後外陰に塗布せしめた。また、治療期間中と治療完了後3カ月を経過した時点での膣入口部 smear を採り、M.I.によつて estrogen の局所効果を判定した。

成 績

1) 臨床的事項

表1に示す様に、年齢は生後5カ月より5歳7カ月迄で、平均年齢は2歳8カ月であつた。主訴は8例中5例が尿放線の乱れ等の排尿異常で、他の3例はいずれも母親が外陰部の異常に気付き、奇形を心配して来院した。癒着の状態は、全体に及ぶものが8例中4例で50%にみられ、部分的癒着の場合も会陰側が開放している症例は無かつた。陰唇を左右に緊張させると、中心線上に光沢のある菲薄膜状の連合がみられるのが普通であるが、症例7のみは癒着の部が厚く重症と考えられた。患児の合併症は、症例2)に左拇指球の発育不全があり、既往症では水痘と外陰炎が夫々2例に認められた。染色体分析は3例に施行し、いずれも46, XX であつた。尚、授乳様式は6例で確認出来たが、人工栄養3例混合栄養3例で、母乳のみによる例が無いのが特徴的であつた。

3) 母親の妊娠分娩歴

患児妊娠中の合併症や薬物服用等は、表1に示す様に特徴的なものは無かつた。分娩も8例中7例は満期産で、低体重児出産は2例にみられるが、早産による未熟児は症例7)のみであつた。

4) 治療成績

表2に示す様に、症例8)以外はいずれも estrogen 軟こう塗布により治療し、治癒迄の期間は2週から21週迄であつた。図1は症例1)の治療前の写真であるが、8週間の治療で図2の如く治癒した。副作用として、外陰部の色素沈着や発赤、離

表 1

patient	age	chief complaints	area of adhesion	past history	complications in pregnancy	drugs admin. in pregnancy	birth weight (gm.)
1) *T. O.	1 y. 11 m.	urinary tract symptoms (U.T.S.)		n.p.	threatened abortion	progesterone depot (preg. 8 w.)	3300
2) *I. U.	2 y. 9 m.	U.T.S.		vulvitis	twin		1450 (full-term)
3) *N. Y.	5 y. 7 m.	U.T.S.		varicella		guromonto (preg. 9-10 w)	3200
4) M. Y.	1 y. 8 m.	noticed by mother		varicella, vulvitis			3200
5) A. Y.	0 y. 5 m.	noticed by mother		n.p.			3350
6) K. Y.	3 y. 4 m.	U.T.S.		n.p.		tavegyl (early in preg.)	3050
7) T. K.	3 y. 9 m.	noticed by mother		n.p.	premature delivery (8 m.)		1400
8) M. M.	3 y. 4 m.	U.T.S.		n.p.			3500

* Chromosome analysis was performed in peripheral leucocytes.
All patients had normal constitution (46, XX).

表 2

patient	treatment	duration of treatment	complications	Maturation	Index	recurrence
				in therapy	control	
1) T. O.	estrogen oint. (E.O.)	8 weeks	pigmentation of labia min.	10/77/13	92/ 7/ 1	free
2) I. U.	E.O.	4 weeks		14/72/14	88/10/ 2	free
3) N. Y.	E.O.	18 weeks		20/70/10	81/14/ 5	free
4) M. Y.	E.O.	2 weeks	hyperemy of vulva	6/40/54	45/48/10	recurred 6 m. after
5) A. Y.	E.O.	2 weeks		8/78/14	n.t.*	free
6) K. Y.	E.O.	4 weeks	local pain at separation	n.t.	n.t.	free
7) T. K.	E.O.	21 weeks	pigmentation of labia min. hyperemy of vulva	4/80/16	70/29/ 1	free
8) M. M.	surgical					lost to follow up
mean :				10/70/20	74/22/ 4	

* not tested

図 1 症例1) T.O. 治療前

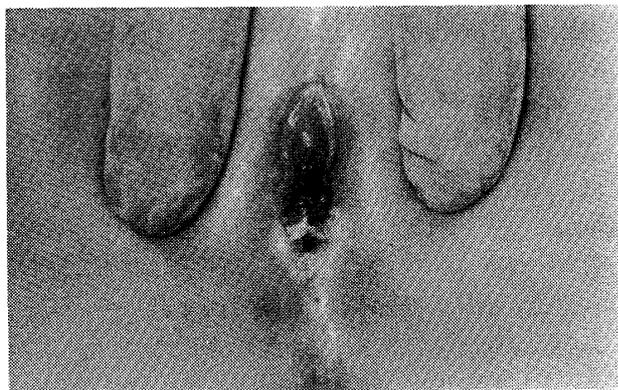
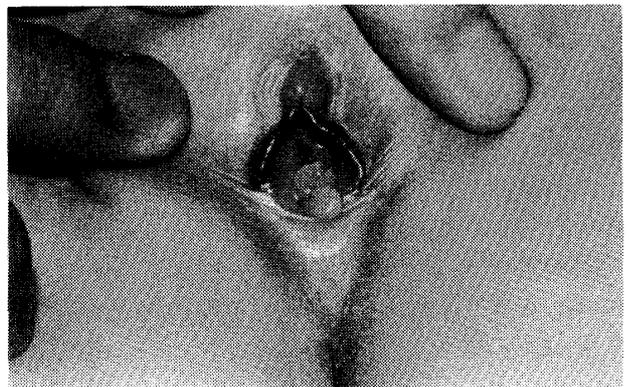


図 2 症例1) T.O. 治療後



開時の疼痛が時にみられるが、いずれも一過性且つ軽度であつた。一方症例8)は、全麻下に外科的解離を試みたが、治療後数日間は排尿時の外陰部痛を訴え、自尿を拒否し、心因性の尿閉の状態となつた。follow-up 期間は昭和52年12月現在で、症例1)の5年4カ月から症例7)の10カ月迄である。その中で症例4)は治療後6カ月目に会陰側1/3に再癒着を生じたが、再治療により1週間で治癒した。また、治療中と治療後3カ月目の膣入口部 smear による M.I. の平均値は、夫々10/70/20と74/22/4で、治療中に明らかな estrogen の局所効果が認められたが、その変化の程度と治癒迄の期間や再発との間に関連は無かつた。

考 案

1) 成因について

本疾患の成因について問題となる点は、congenital か acquired かという事であろう。現在迄の報告では、前者を主張したものに Campbell⁵⁾の説がある。即ち、発生学上その癒合の状態が男児の scrotal union に類似している事から、先天異常の可能性を主張した。また、Huffman⁷⁾は、鼠の膣開口が卵巢機能と密接に関係する事や、本疾患が性機能の発現してない時期に発症する事から、発育不全的要因を重視した。一方、Nowlin et al.¹⁰⁾は、生下時より観察出来た57例で、出生時の癒合が1例も無かつた事から後天的に発症するものとし、同様な立場をとるものに Bowles et al.⁴⁾や Capraro et al.⁶⁾の報告がある。今回、出生時より観察出来たのは症例2)のみであるが、生下時の癒合はみられなかつた。また、治療完了後3カ月目の膣入口部 smear の M.I. の平均値74/22/4は、Novak et al.⁹⁾の報告した同年代の児の平均値80/20/0とほぼ一致しており、幼児期の低 estrogen 環境は、幼児に一樣にみられる本疾患発生上の一つの因子であり、これに何らかの誘因が加わつて初めて発症するものと考えられる。しかも estrogen 軟こうで治癒した症例の一部でも再発が起こる点からしても、後天的発症とするのが妥当であろう。また、癒着の状態をみると、会陰側が開放している例が皆無である点や、再発が

会陰側より生じた点等から、癒着は会陰側に生じやすい事が窺われる。幼児期の外陰や大腿は皮下脂肪の沈着が豊富で、特に会陰側は陰唇相互の可動性も少なく接着した状態にあり、maceration や炎症が生じやすく、その治癒過程で癒着が生ずる事が充分考えられる。今回、外陰炎の既往は2例のみに確認されたが、Nowlin et al.¹⁰⁾は pre-clinical な外陰炎でも癒着が起こり得るとしており、外陰炎が原因となる可能性は否定出来ない。

更に興味深い点は、母乳のみによる授乳が無かつた事である。本邦で市販されている人工乳と母乳の成分を比較すると、vitamin A の含量が母乳の120i.u. に対して人工乳2,000i.u. 前後で極めて高い¹⁾。動物実験であるが、Kahn et al.⁸⁾は rat に過剰の vitamin A を投与し、腔粘膜の角化が抑制されると報告しており、この点に関しても一応検討の価値があると考えられる。一方、症例2)で左拇指球の発育不全がみられたが、Capraro et al.⁶⁾や岩崎ら²⁾は、本疾患に先天異常の合併が多い事を報告しており、先天的要因による生後発生という観点からすれば、必ずしも先天異常の可能性も否定出来ず、更に今後の検索も必要であろう。

2) 治療について

本疾患の estrogen による治療は、1956年の Tenton et al.¹¹⁾による報告が最初のものである。即ち、diethylstilbesterol の経口投与により治癒した2例を報告している。その後 Huffman⁷⁾が estrogen 軟こうによる治療を提唱して以来、欧米では estrogen 軟こうにより治療された例が多くみられる。今回の我々の治験では、7例の本疾患患者を estrogen 軟こうにより治療し、全例治癒せしめ得た。Huffman⁷⁾も estrogen 軟こうによる失敗例は無いとしているが、Capraro et al.⁶⁾の90%の成功率とする報告や、Aribarg³⁾の22例中3例は最終的に外科的治療が必要であつたとする報告もある。この様に稀に estrogen 軟こうによる不成功例もみられるが、外科的療法は、術後尿閉をきたした症例8)の様な例もあり、患児にとって精神的、肉体的負担も大きい。また、再発率も高

く, Nowlin et al.¹⁰⁾ によると20%, Capraro et al.⁶⁾ 並びに Aribarg³⁾ はいずれも100%に再発がみられるとしている。副作用の点でも, 一部に一過性, 軽度の発赤や色素沈着をみるのみで, estrogen も微量でしかも局所投与である点から, 児の内分泌環境に影響を与える事も考え難い。以上の点から, 本疾患治療の first choice としては estrogen 軟こうによるのが合理的と考える。

まとめ

小児の陰唇癒着症8例の検討により, 成因については, 母児の臨床的事項, 腔入口部 smear の M.I. 癒着の状態から, 幼児期の低 estrogen 環境に炎症や maceration 等が誘因となり初めて発症すると考えられた。治療は, 副作用や再発の点から, estrogen 軟こうによる方法を first choice とするのが妥当と思われる。

文 献

1. 足高善雄, 足立春雄, 久保健太郎, 石塚直隆, 滝 一郎, 前山昌男, 倉智敬一: 新産科学, 344, 南山堂, 東京, 1969.
2. 岩崎寛和, 宇田川芳男, 村井和夫, 土尾新一:

陰唇癒着症の治療. 産婦の世界, 26: 343, 1974.

3. Aribarg, A.: Topical oestrogen therapy for labial adhesion in children. Brit. J. Obstet. Gynecol., 82: 424, 1975.
4. Bowles, E.H. and Childs, S.L.: Synechias of vulva in small children. Am. J. Dis. Child., 66: 258, 1943.
5. Campbell, F.M.: Vulvar fusion. J.A.M.A., 115: 513, 1940.
6. Capraro, J.V. and Greenberg, H.: Adhesion of the labia minora. Obstet. Gynecol., 39: 65, 1972.
7. Huffman, J.W.: The gynecology of childhood and adolescence. 36. W.B. Saunders Co., Philadelphia, 1968.
8. Kahn, H.R. and Bern, A.H.: Antifolliculoid activity of vitamin A. Science, 111: 516, 1950.
9. Novak, R.E., Jones, S.G. and Jones, W.H.: Novak's textbook of gynecology, 678, Williams & Wilkins Co., Baltimore, 1965.
10. Nowlin, P., Adams, R.J. and Nalle, C.B.: Vulvar fusion. J. Urol., 62: 75, 1949.
11. Tenton, B.J. and Treadwell, C.N.: The management of nonspecific vulvitis in children. Am. J. Obstet. Gynecol., 72: 674, 1956.

(No. 4329 昭53・3・2 受付)