

診 療

先天性水腔症 (Hydrocolpos) の出生前診断

熊本市民病院産婦人科

*熊本市民病院新生児医療センター

真鍋 昭彦 森 一朗 諫山 義人
綱脇 現 近藤 裕一*

Antenatal Diagnosis of Hydrocolpos

Akihiko MANABE, Ichiro MORI, Yoshito ISAYAMA,
Akitsu TSUNAWAKI and Yuichi KONDO*

Department of Obstetrics and Gynecology, Kumamoto Municipal Hospital, Kumamoto

*Department of Neonatology, Kumamoto Municipal Hospital, Kumamoto

Key words: Hydrocolpos • Hydrometrocolpos • Antenatal diagnosis • Persistent cloaca

結 言

先天性水腔症 (Hydrocolpos) は、何らかの原因で胎児期に腔あるいは腔口の閉鎖が起こり、母体からの多量のエストロゲンの影響により、胎児腔内に多量の分泌物が貯留し、腔が嚢腫状に拡張する稀な疾患である。本疾患は新生児期、乳児期にはじめて診断されることが多く出生前診断の報告は少ない。今回、われわれは妊娠36週に先天性水腔症と出生前診断した症例を経験したので、その特徴的超音波所見を中心に、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

母親: H.M., 23歳, 経妊2回, 経産1回。

家族歴, 既往歴: 特記すべきことなし。

月経歴: 初経13歳, 月経周期28日型, 整, 持続5日間。

妊娠経過: 平成2年5月31日から5日間を最終月経として妊娠し、以後近医にて妊婦検診を受けていた。妊娠34週に胎児下腹部に中隔を有するcystic echoを認め、その後増大傾向を認めたため、妊娠36週0日に当科紹介入院となった。

入院時所見: 身長160cm, 体重58kg, 血圧100/60mmHg, 子宮底長32cm, 腹囲90cm, 浮腫(-), 尿蛋白(-), 尿糖(-)。

血液検査所見: TORCH(-), 一般血液検査, 血液生化学検査に異常を認めず, hPLは9.3 μ g/dlであつた。

NST 所見: reactive

超音波所見: 胎児計測は児頭大横径86mm, 腹部前後左右径96 $\times$ 104mm, 大腿骨長65mm, 上腕骨長53mmで発育は正常であつた。羊水ポケットは40mmで正常であつた。胎児縦断像では胎児の下腹部に膀胱とは別に、中隔を有する50 $\times$ 50 $\times$ 85mmのcystic echoを認め、内部は中隔により左右対称に2分されていた。また、その内部に18 $\times$ 24 $\times$ 28mmのechogenic massを2個認めた(図1)。横断像ではcystic echoは膀胱の背側に位置し、echogenic massはcystic echo内の背側に接していた(図2)。外陰部の超音波像は女児型であつたが、陰唇は未発達であつた(図3)。両側の腎臓に異常は認めず、時間尿量も正常であつた。ほかには異常所見は認めなかつた。以上の超音波所見より、cystic echoは拡張した腔で、echogenic massは双角子宮と考え、腔横中隔を有する先天性水腔症と診断し、妊娠38週に計画分娩を行つた。

新生児所見および経過: 児は2,954gの女児、アプガールスコア1分9点であり、児の外陰部は陰唇の発達が悪く腔閉鎖と鎖肛を認め(図4)、当院



図1 妊娠36週の胎児下腹部超音波像(縦断像)。中隔(▽印)に二分された cystic echo を認め、内部に echogenic mass (↓印) を2個認める。

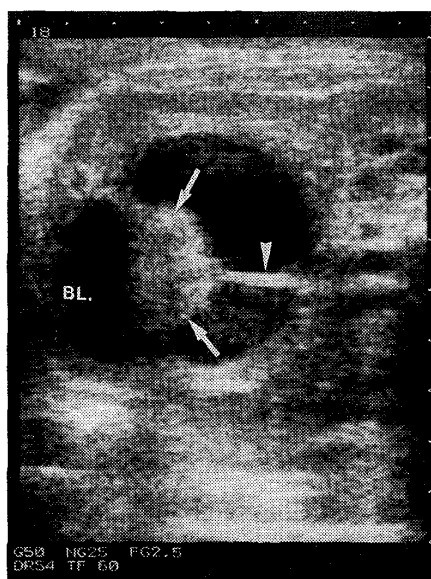


図2 妊娠36週の胎児下腹部超音波像(横断像)。膀胱の背側に中隔(▽印)に二分された cystic echo を認め、内部に echogenic mass (↑印) を2個認める。

NICU 入院となった。倒立位のレントゲン所見で、鎖肛は高位鎖肛と診断し、1生日に横行結腸を用いた人工肛門造設術を施行した。腔腔の貯留液は超音波上8生日には消失した。27生日に施行したMRIで双角子宮を認めたが、腔腔は縮小しており腔横中隔は明らかではなかった(図5)。術

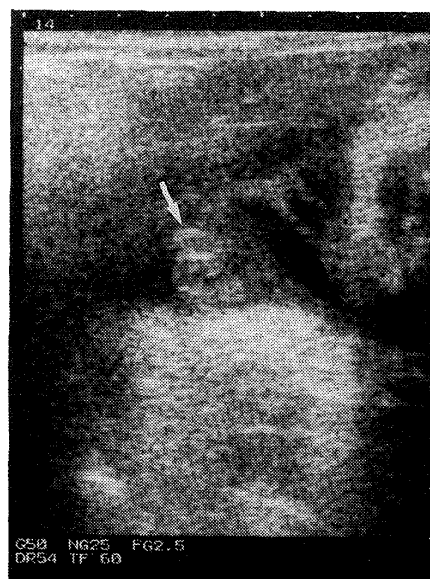


図3 妊娠36週の胎児外陰部超音波像。未発達な陰唇(↓印)を認める。

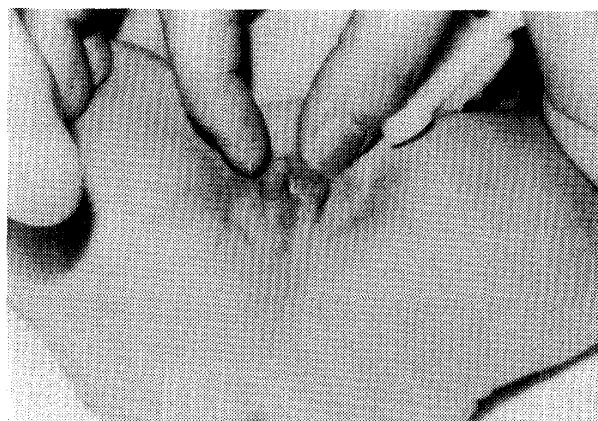


図4 新生児外陰部所見。未発達な陰唇と腔閉鎖・鎖肛を認める。

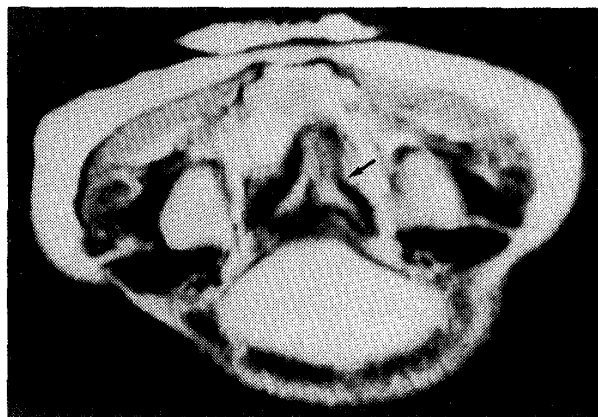


図5 新生児MRI所見(27生日)。双角子宮(↓印)を認める。

後の経過は良好で20生日に退院となつた。現在外来通院中で腔閉鎖と高位鎖肛の根治術待機中である。

考 察

先天性水腔症は Müller 管の分化過程で、あるいは尿生殖洞と Müller 管の癒合の過程で何らかの障害が起こり、腔あるいは腔口の閉鎖が発生し、これに妊娠に伴う母体のエストロゲンの影響で胎児の子宮内膜、頸管腺、腔粘膜腺が刺激され分泌過剰がもたらされ、腔に多量の分泌液が貯留し腔が囊腫状に拡張する疾患である⁵⁾⁷⁾。分泌液の貯留が子宮に及び子宮腔の拡張を伴う場合は先天性水子宮腔症 (Hydrometrocolpos) と呼ばれる。先天性水腔症および先天性水子宮腔症の発生頻度は出生3万に1例とされ極めて稀な疾患であり¹⁰⁾、泌尿生殖器を中心とする他の合併奇形も多いといわれている。診断は新生児期あるいは幼児期に下腹部腫瘍や腹部膨満として気付かれる場合がほとんどである³⁾。

先天性水子宮腔症の出生前診断に関しては Davis et al.⁴⁾の報告以来、数例の報告²⁾⁶⁾⁹⁾しかなく、本邦では石松らの報告²⁾が最初である。同様に先天性水腔症の出生前診断も少なく著者の知る限り今井ら¹⁾の報告だけである。

先天性水子宮腔症と先天性水腔症はその発生原因は似ているが、形態的には大きな違いがあり超音波所見もかなり異なつた所見が得られるものと思われる。本症例においては、1) 胎児下腹部に中隔を有する cystic echo を外陰部の近くより認める。2) cystic echo は膀胱の背側に位置し、長橢円形である。3) cystic echo に接して echogenic mass を2個認める。4) 陰唇の発達が悪い。などの超音波所見が得られたが、これらは先天性水腔症胎児の特徴的な超音波所見であると思われる。

先天性水腔症の鑑別疾患としては、まず先天性水子宮腔症があげられるが、石松ら²⁾は女兒で胎児下腹部に cystic echo を認め胎児子宮の確認ができない場合、先天性水子宮腔症を疑い、陰唇が小さく描出された点も注意を要すると報告している。子宮の方が腔より膨張しにくく、子宮の拡張による cystic echo は腔の拡張と異なりほぼ球形

に近いものになるものと思われる。陰唇が小さく描出された点は本症例と同様であるが、Davis et al.⁴⁾は貯留液による外陰部の圧迫により、むしろ大陰唇は拡張して描出されたと報告している。外陰部の超音波所見は閉塞部位の違いにより異なる所見が得られるものと思われるが、外陰部の超音波所見は診断上重要な所見の一つと思われた。他の鑑別疾患としては尿膜管囊腫や巨大膀胱などの泌尿器疾患や腸間膜囊腫などの消化管疾患があげられるが腎、尿路系の注意深い観察や羊水量の測定で鑑別可能と思われる。生殖器疾患としては卵巣腫瘍が重要であるが、水腔症や水子宮腔症では陰唇の発達が正常と異なる場合があること、胎児縦径に一致した子宮あるいは腔中隔を有することがあること⁹⁾、cystic echo は外陰部の近くより認めること、などが鑑別点になると思われる。

本疾患の治療は原因疾患により異なる。すなわち処女膜閉鎖や腔横中隔によるもので直視下に切開可能な症例では閉鎖膜の切開や切除で十分であり、直視下に切開不可能な症例や高位の腔横中隔の場合は経会陰式では隣接臓器の損傷を来す危険があるため経腹式にドレナージを施行後、形成術を施行するのが望ましいとされている。本症例の腔貯留液は8日でほぼ吸収され、再貯留や感染徴候は認めず、切開せずに経過観察中であるが、今後切開後も再閉塞しない時期に根治術予定である。

以上、出生前診断した先天性水腔症を経験したので、その超音波所見を中心に報告した。本症例は鎖肛を合併していたがほかには合併奇形を認めず予後良好であつたが、予後不良の染色体異常例や腎奇形合併例の先天性水腔症の報告も多く¹⁸⁾、他の合併奇形の検索は予後判定上でも重要と思われる。

文 献

1. 今井史郎, 林 子耕: 水腔症3例の出生前超音波断層像. 日超医論文集, 57: 691, 1990.
2. 石松順嗣, 吉松喜代隆, 日高士幸, 中山吉則, 松永隆元, 河野勝一, 浜田悌二, 小村順一, 矢野博道: Hydrometrocolpos の1例とその出生前超音波所見. 周産期医学, 15: 1429, 1985.
3. 久保雅子, 平井慶徳: 新生児期 Hydrometro-

- colpos の 1 治験例. 小児外科・内科, 5: 239, 1973.
4. Davis, G.H., Wapner, R.J., Kurtz, A.B., Chhibber, G., FitzSimmons, J. and Blocklinger, A.J.: Antenatal diagnosis of hydrometrocolpos by ultrasound examination. J. Ultrasound Med., 3: 371, 1984.
 5. Dobszay, L.: Hormonal reaction of pregnancy. Am. J. Dis. Child., 56: 1280, 1938.
 6. Hill, S.J. and Hirsch, J.H.: Sonographic detectin of fetal hydrometrocolpos. J. Ultrasound Med., 4: 323, 1985.
 7. Mahoney, P.J. and Chamberlain, J.W.: Hydrometrocolpos in infancy, congenital atresia of the vagina with abnormally abundant cervical secretions. J. Pediat., 17: 772, 1940.
 8. Nguyen, L., Youssef, S., Guttman, F.M., Ahlgren, L.S. and Schlecher, R.: Hydrometrocolpos in neonate due to distal vaginal atresia. J. Pediat. Surg., 9: 510, 1984.
 9. Russ, P.D., Zavitz, W.R., Pretorius, M.D., Manco-Johnson, M.L., Rumack, C.M., Pfister, R. R. and Greenholz, S.K.: Hydrometrocolpos, uterus didelphys, and septate vagia: An antenatal sonographic diagnosis. J. Ultrasound Med., 5: 211, 1986.
 10. Westerhout, F.C. Jr., Hodgman, J.E. and Anderson, G.: Congential hydrocolpos. Am. J. Obstet. Gynecol., 89: 957, 1964.
- (No. 7203 平4・4・17受付)