

診 療

先天性陰唇癒合症の2例

京都大学医学部婦人科学産科学教室

由良 茂夫 高倉 賢二 鶴田 優子 森 崇英

Two Cases of Congenital Labial Fusion

Shigeo YURA, Kenji TAKAKURA, Yuko TSURUTA
and Takahide MORI

Department of Gynecology and Obstetrics, Kyoto University Faculty of Medicine, Kyoto

Key words: Congenital labial fusion

緒 言

陰唇癒合症あるいは癒着症とは、左右の陰唇が部分的あるいは全体的に癒合し、膣前庭部を覆う状態であり、主に新生児期から乳幼児期に認められる外陰部異常である。本症の報告例は少なく、発生頻度、成因等に関して不明の点が多いが、多くは後天性に発生し、先天性のものはきわめて稀といわれている。今回当科において44歳と33歳の先天性と考えられる陰唇癒合症の2症例に対して手術療法を行う機会を得たので、この希有な症例の臨床経過を報告するとともに文献的考察を加える。

症 例

症例1：44歳，未婚未妊女性。

主訴：排尿困難，月経期間延長。

家族歴：母，姉に高血圧

既往歴：15歳で虫垂炎，23歳で副鼻腔炎にて手術。軽度高血圧にて降圧剤服用中。

月経歴：13歳で初経，30日周期，整，以前は5日間持続，中等量なるも約1年前より少量出血が1～2週間持続。

現病歴：小児期より尿線細小や軽度の排尿困難を自覚していた。7カ月前，尿閉状態となり，他院婦人科および泌尿器科を受診し，外陰奇形と診断され，当科を紹介され来院した。平成4年3月31日当科初診時，尿閉状態はやや改善していたが，月経血の排出困難に伴う月経期間の延長を自覚し

ていた。

全身所見：顔貌，体型は正常成熟女性であり，そのほかも特記すべき異常なし。

局所所見：図1-1に示すように，小陰唇は發育不良で，色素沈着の範囲も狭く，中央で完全に癒合閉鎖していた。陰核は正常大であったが，小陰唇に引き続く包皮の癒合により完全に埋没しており，露出不能であった。癒合部には癒痕の形成や縫線の存在は認めなかった。その後方には外科ゾンデがやっと挿入できる程度の小孔が認められた。肛門は位置・形状ともに正常であった。

画像診断：超音波断層法およびMRIにて尿道，膀胱は正常に認められ，子宮および膣腔の存在も確認された。ただし外尿道口の位置は不明であった。また子宮体部後壁に直径6cmの筋腫様結節を認めた。

手術時所見：小陰唇癒合部後方の小孔より挿入した外科ゾンデにて探索しながら，前方は陰核直上まで後方は肛門方向に約2cmまで癒合部を正中切開したところ，膣前庭の全貌が露出した。外尿道口は正常の位置で膣前庭に開口し，処女膜は点状に開口するのみであった。癒着防止および小陰唇形成の目的で，切開創面を内反する形で縫合，止血した。処女膜には十字切開を加えた。術後経過は順調で図1-2のように尿道，膣は正常の位置に開口した状態となった。

症例2：33歳，未婚未妊女性。

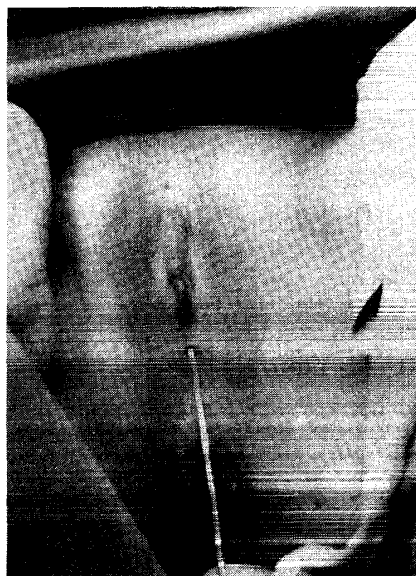


図 1-1



図 1-2

図1 症例1の外陰部所見。術前，外陰部小孔より外科ゾンデを挿入（図1-1）。術後1週間（図1-2）。

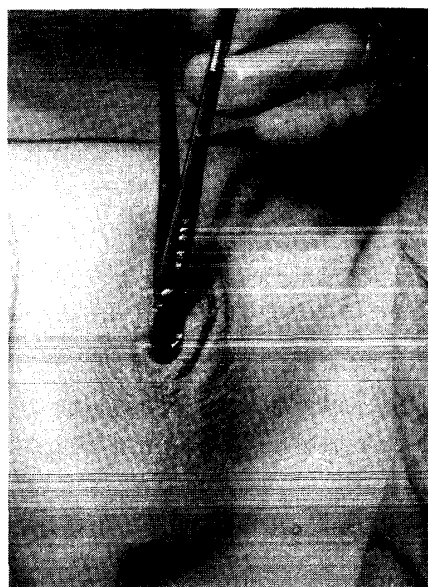


図 2-1



図 2-2

図2 症例2の外陰部所見。術前，外陰部開口部よりケリー鉗子を挿入（図2-1）。術中，膣前庭縫縮前，尿道にバルーンカテーテル挿入（図2-2）。

主訴：不正性器出血。

家族歴：母が乳癌。

既往歴：特記すべきことなし。

月経歴：14歳で初経，32日周期，3日間持続，整，少量。

現病歴：12歳頃より外陰部の異常に気づいてい

たが，月経の発来があったため放置していた。2，3年前より月経前後の数日間褐色の帯下が持続するようになったため他院を受診し，外陰奇形の診断にて紹介され来院した。なお，在胎中に母体が切迫流産治療のため黄体ホルモン剤を服用しており，また，生下時に外陰の形態異常のため，性別

表 1 先天性陰唇癒合症の 2 例

	症 例 1	症 例 2
年齢	44歳	33歳
主訴	排尿困難 月経期間延長	不正性器出血
異常発見時期	小児期	生下時
外陰部形態		
陰唇	発育不良	中央で癒合
縫線	なし	あり
陰核肥大	なし	あり
内性器		
子宮	筋腫あり	異常なし
腔	異常なし	後方へ変位
尿道	異常なし	後方へ変位
推定原因	特発性形成不全	胎生期の 高アンドロゲン状態
治療	切開形成手術	切開形成手術

の判定が困難であった。

全身所見：顔貌，体型は正常成熟女性であり，そのほかに特記すべき異常なし。

局所所見：図 2-1 のように後陰唇交連が前方に偏位する形で小陰唇および大陰唇の肛門側の 2/3 が癒合しておりその中央に縫線を認めた。前方は約 2cm の開口部が認められ腔前庭の粘膜が存在したが外尿道口は確認できなかった。陰核は軽度の肥大を示しており，通常より前方に位置していた。肛門は正常の位置に存在した。

画像診断：超音波断層法および MRI にて膀胱，子宮は正常に認められ，尿道および腔腔の存在も確認されたが，外尿道口の位置は不明であった。腎盂造影で腎，尿管，膀胱の異常は認めなかった。

手術時所見：小陰唇の開口部より後方に向け癒合部を正中切開したところ，図 2-2 のように腔および外尿道口は後方に偏位して開口していた。腔前庭は前半部に広い粘膜面を形成しその直下には恥骨結合を触知した。切開面の再癒着を防止できるように創面を内反する形で縫縮した後，腔前庭部前半部分の広い粘膜面をできる限り前後に縫縮し，外尿道口の位置を前方に矯正した。術後経過は順調で排尿障害等は認めなかった。

考 察

陰唇癒合症は左右の陰唇が部分的あるいは全体的に癒着した状態であり，そのほとんどは後天性に発生するといわれている¹⁾。多くは乳幼児期に，時には閉経後にもみられ，原因としては低エストロゲン状態で菲薄化した外陰部に感染や傷害が起きやすく，その治癒過程で癒着が生ずるためと考えられている²⁾。この場合には陰核肥大を伴わず，癒着の中央に縫線を認め，その癒着線上に小孔を有するのが特徴的とされている³⁾。

これに対して，先天性にみられるものは発生機序が異なると考えられ，labioscrotal folds の癒合¹⁾，urogenital membrane の開口不全³⁾などがその成因と考えられている。これら先天性癒合症はきわめて稀であり，これまで，7 歳の 1 例⁴⁾および生下時に陰唇癒合を確認し得た 1 例⁵⁾についての報告しか見当たらない。前者では小陰唇が後方の小孔を残して完全に閉鎖していたが，外尿道口に異常はなかったと報告されている。後者は外陰部形態に関する記述がなされていない。

自験症例 1 は図 1-1 にみられるように，①色素沈着のある部分が異常に小さく小陰唇の形成不全も合併していること，②中央の縫線がなく，炎症性癒着の痕跡も認められないこと，③月経整順で低エストロゲン状態を認めないにもかかわらず，陰唇癒合の軽快を認めていないこと，④手術時に切開した組織に癒着形成を認めなかったこと，などから先天性の陰唇癒合症と考えられた。

先天性陰唇癒合症の中でも，胎生期のアンドロゲン過剰を原因として発生したものは性分化異常の一徴候として陰唇癒合症が存在し，原因も特定できており，胎生期アンドロゲン過剰症とでもいふべき特異な症候群を形成する。副腎性器症候群や妊娠中に流産防止のために投与されたアンドロゲン作用を有する合成黄体ホルモン剤で女子胎児の外陰の男性化が起こることがある。すなわち陰嚢様の陰唇癒合を呈し，陰核肥大を伴う。この場合の陰唇癒合は大陰唇の癒合が主である。本邦での報告例では全例に著明な陰核肥大を伴っており^{6,7)}，陰唇癒合よりも高頻度に陰核肥大を認めている。この陰核肥大は非進行性で，経過とともに

縮小傾向を認めるといわれているが⁶⁾、陰核肥大が高度の場合は正常な形態となる可能性は低い。鴨井らの報告した28歳の陰唇癒合（女性仮性半陰陽）症例でも陰核肥大を伴い、また、尿道が腔に開口して泌尿生殖洞を形成し、通常より広い腔前庭を認めた⁸⁾。自験症例2は、①母体に妊娠中の合成黄体ホルモン剤服用の既往があり、②陰核の肥大が認められることや、③大陰唇の癒合を伴っていることなどから胎生期の高アンドロゲン状態に起因する外陰部形態異常と考えられる。

陰唇癒合症は無症状のことも多いが、時に局所の不快感や排尿障害、月経時の外陰部閉塞感などを来す。自験症例1では尿閉を来したが、月経血に含まれる凝血塊により開口部が閉塞されたために起こったものと考えられた。自験症例2の不正性器出血の原因としては器質的疾患を認めず、中間期出血などの機能性出血と考えられた。陰唇癒合症の診断は、視診により容易に行えることが多いが、ことに幼児期においては腔閉鎖、腔欠損症などとの鑑別に苦慮することもある⁷⁾。超音波断層法やMRIなどの画像診断法の進歩により、内性器の構造が容易に把握できるようになり、これらを利用することによって鑑別診断も容易となった。母体の黄体ホルモン剤服用や副腎性器症候群などにおいては、前述したように、陰核肥大を伴い、大陰唇癒合を主体にした陰嚢様の先天性陰唇癒合を来すことが特徴である。

後天性の陰唇癒合症においてはエストロゲン欠乏が発症に深く関与しており、治療としてエストロゲン投与が有効であり、再発率も低いといわれている⁹⁾。また後天性の陰唇癒合症では患児の成長につれて自然治癒もある程度期待できる。癒着が高度な症例ではこれらの保存療法で完全な治癒の認められないものもあり、岸らは癒着部の肥厚

が厚く癒着が強固であったために観血的治療を追加して良好な結果を得た症例を報告している²⁾。自験症例でも正中線上の癒合陰唇が高度に肥厚し、手術療法を行わざるを得なかった。

今回、先天性陰唇癒合症の2例を報告したが、本症は報告例はきわめて少ないものの、症状が軽度な場合、医療機関に受診しないことも多いと考えられ、実際の発生頻度は不明といわざるを得ない。実態を明らかにするには女兒出生時における産科医の詳細な外陰部の観察が必要と考えられる。

文 献

1. Capraro VJ, Greenberg H. Adhesions of the labia minora. A study of 50 patients. *Obstet Gynecol* 1972; 39: 65—69
2. 岸 浩史, 世古昭三, 石野外志勝. 小陰唇癒着症の一例. *西日泌尿* 1991; 53: 51—53
3. 本田伊克, 引間規夫, 藤岡良彰, 石井洋二, 菊地宏和, 山田記道, 川井 博. 小陰唇癒着症の2例. *臨泌* 1982; 36: 887—890
4. Taylor WN. Vulvar fusion. Two cases with urological aspects. *J Urol* 1941; 45: 710—714
5. Bowles HE, Childs LS. Synechias of vulva in small children. *Am J Dis Child* 1943; 66: 258—263
6. 石塚直隆, 川島吉良, 中西 勉, 須川 信, 西川義雄. 合成黄体ホルモンによる女性新生児性器異常. *産婦人科の世界* 1962; 14: 925—943
7. 三谷 茂, 中嶋唯夫, 丸山英一, 北村 益. 当院に於いて最近経験した半陰陽児出生に対する考察. *日不妊会誌* 1961; 6: 200—205
8. 鴨井青龍, 沢倫太郎, 鈴木 聡, 渡辺美千明, 岡本 哲, 波多野久昭, 河村 堯, 佐々木茂, 荒木勤. 胎生期に投与された黄体ホルモンが原因と思われた女性仮性半陰陽の1例. *日産婦東京会誌* 1988; 37: 41—44
9. 徳永達也, 福田 稔, 前山昌男, 藤崎俊一. 小児の陰唇癒着症—成因並びに治療法に関する検討—, *日産婦誌* 1978; 30: 757—760

(No. 7579 平6・11・11受付)