

酸化再生セルロース膜を用いて造腔術を行った腔欠損症の1例

熊澤由紀代, 熊谷 仁, 金森 勝裕
児玉 英也, 寺田 幸弘

秋田大学大学院医学系研究科 医学専攻機能展開医学系 産婦人科学講座

(received 20 December 2013, accepted 20 February 2014)

Vaginoplasty with oxidized regenerated cellulose in a patient with congenital vaginal agenesis

Yukiyo Kumazawa, Jin Kumagai, Katsuhiko Kanamori, Hideya Kodama and Yukihiko Terada

Department of Obstetrics and Gynecology, Akita University Graduate School of Medicine

Abstract

Congenital vaginal agenesis is a rare developmental anomaly of the Müllerian duct that occurs in approximately 1 out of every 5,000 live births. The patient was an 18-year-old woman who presented with primary amenorrhea due to vaginal agenesis. She had a functional uterus. Hysterectomy was performed at the same time as vaginoplasty with a new method that uses oxidized regenerated cellulose for covering the new vaginal wall. Postoperatively, a mold was placed in the neovagina continuously. There were no complications after surgery and the neovagina became completely epithelialized. One year after surgery, the vaginal cavity was of sufficient width and length and free of any adhesions. Vaginoplasty using oxidized regenerated cellulose is a simple, noninvasive method with easy management.

Key words : vaginal agenesis, oxidized regenerated cellulose, vaginoplasty

緒 言

先天性腔欠損症は、約5,000人に1人の頻度で発生し、原因はミュラー管の発生異常である。約5%に機能性の子宮を有するが、多くの場合子宮や卵管の形成不全を伴う。腔欠損に対する造腔術は、その管腔構造の維持と湿潤機能を考慮し腸管や腹膜を用いる方法が推奨され、さまざまな手法が考案され施行されてきた。しかし、手術に伴う合併症や術後の腔萎縮など、患者のQOLに対する不都合も生じうる。

今回、我々は腔欠損症例に対し、観血的な腔形成術

後に酸化再生セルロース膜とプロテーゼを用いて管腔構造の維持が可能であった症例を経験したので、若干の文献学的考察を加えて報告する。

症 例

症例：18歳（高校3年生）

主訴：原発性無月経

既往歴：特記事項なし

現病歴：16歳時、原発性無月経を主訴に近医産婦人科を受診した。腹部超音波検査で異常なく、ホルムストローム療法が施行されたが消退出血を認めなかった。カウフマン療法を行ったところ、下腹部痛のみで消退出血を認めず、この時施行された腹部超音波検査で腹腔内に血液貯留の所見を認めた。視診では外陰部は正常女性型であったが、腔口を認めなかった。今後の精査目的に二次病院へ紹介された。

Correspondence : Yukiyo Kumazawa
Department of Obstetrics and Gynecology, Akita University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Hondo, Akita 010-8543, Japan
Tel : 81-18-884-6163
Fax : 81-18-884-6447
E-mail : kumazaway@doc.med.akita-u.ac.jp

(36)

A case of vaginal agenesis

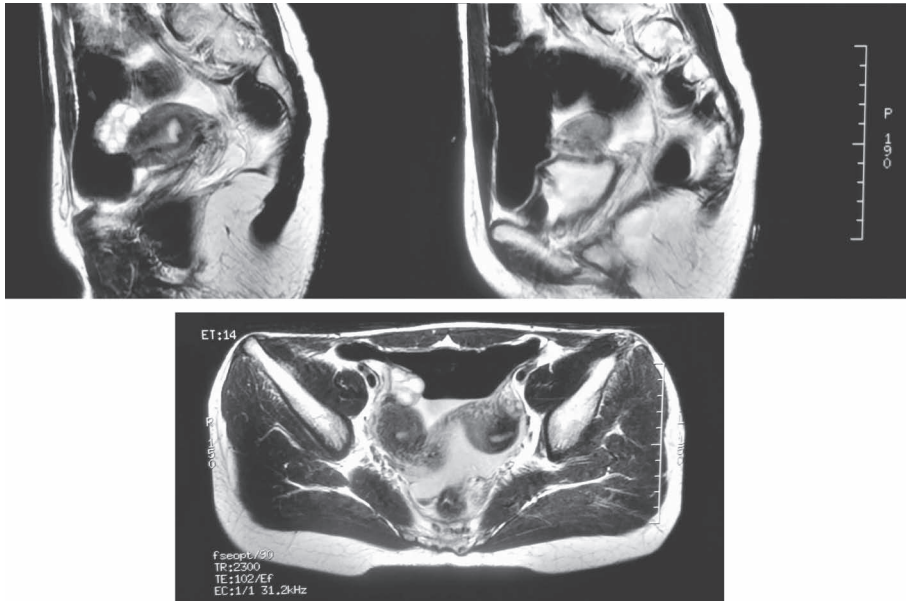


図1. MRI画像 T2強調矢状断像および水平断像。
水平断像で子宮体部は左右に分かれており、重複子宮と診断される。矢状断像で、右側子宮体部は左側と比較して大きく内膜肥厚の所見を認め、機能性子宮である。

前医現症：身長 156 cm，体重 43 kg，乳房発育・恥毛発育は Tanner 分類 IV° であり，第二次性徴は正常であった。外陰部は正常女性型であったが，腔口を認めなかった。

前医検査所見：血液および生化学的検査，ホルモン検査に異常なし。末梢血染色体検査では，46XX，正常核型であった。骨盤部 MRI 検査では重複子宮を認め，両側の子宮頸部は細く索状であった（図1）。右側卵巣はやや多嚢胞であったが，左側卵巣は正常であった。DIP 検査では両側腎および尿管の走行は正常で，先天的な腎盂・尿路系の異常はなかった。診断的腹腔鏡が施行され，右側子宮は鶏卵大，左側子宮はピンポン玉大で左右の子宮は索状に連続していたが，子宮頸部は細く索状になっており腹膜に連続していた。両側附属器に肉眼的な異常はなく，腹腔内には血液が 100 ml 程度貯留していた。

臨床経過：右単角子宮，左副角子宮，腔欠損の診断となり，今後の治療目的に当院へ紹介となった。前医の診断を受け，根治手術の時期および手術術式について検討した。月経時の周期的な痛みへのコントロールが保存的治療で可能であったため，高校卒業後の進路が決まり次第手術を行う方針とした。術式については機



図2. 開腹所見。
右側子宮は鶏卵大に腫大，左側子宮はピンポン玉大で小さく，左右の子宮は体下部で連続している。明らかな頸部は認めず，索状となり腹膜に連続している。

能的子宮を保持することから子宮を温存するか否か，また腔形成術の方法について相談した結果，本人および両親が術後の合併症が少ない方法を希望され，子宮を摘出し腔形成を施行する方針となった。

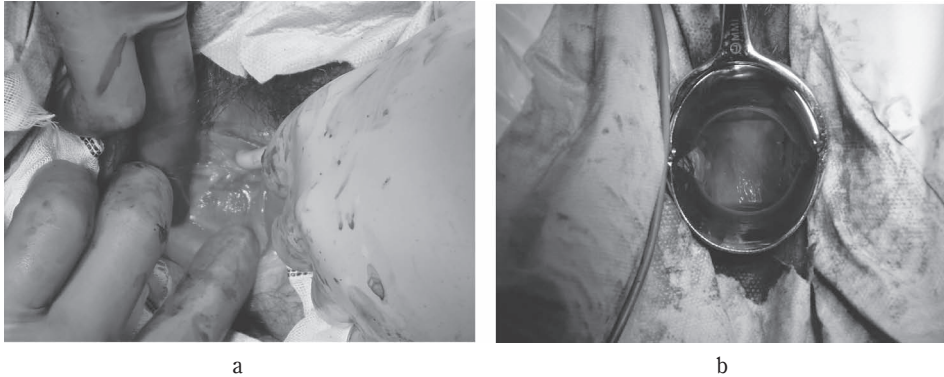


図3.

a. 造陰術前.

尿道口の下方に浅いくぼみを認めるが、陰口は存在しない.

b. 造陰術直後.

クスコ氏陰鏡が挿入・開大することができる状態まで陰腔がひろがっている.

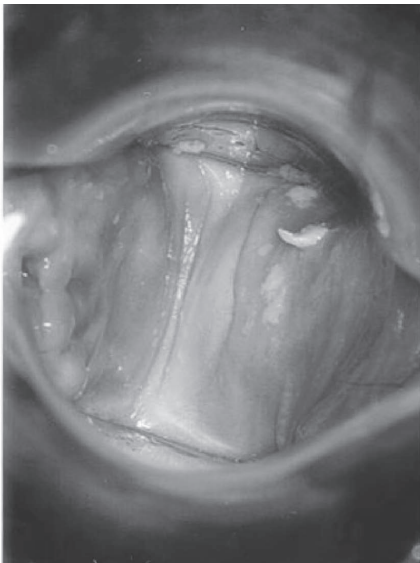


図4. 術後1年後の陰鏡診.

狭小化や硬縮などはなく、陰腔内は十分な広がり
を維持している.

入院経過：腹式子宮全摘術および造陰術を施行した。下腹部横切開にて開腹したところ、右子宮から右卵管にかけて溜血腫のため鶏卵大に腫大していた。左子宮はピンポン玉大で小さく、左卵管は萎縮していた。子宮頸部は存在せず、左右の子宮は索状に連続していた（図2）。両側の卵巣は正常であった。型どおり子

宮摘出を行った。続いて、陰前庭部にH字状切開を入れ、尿道と直腸の間を腹腔内方向に鈍的に開大させた。両側の球海面体筋を切断し、周辺組織を挫滅しないようメトロイリゼを用いて陰腔内を進展し、尿道・膀胱・直腸などの損傷に注意し、腹腔内から造陰方向を確認しながら腹膜直下まで腔を掘り進めた（図3）。筒状に広げた腔内に酸化再生セルロース膜を巻きつけたプロテーゼを留置し、手術を終了した。

術後は継続的にプロテーゼを挿入し陰腔を維持した。隔日で腔処置とし、プロテーゼ抜去・腔内イソジン消毒・プロテーゼ再挿入を行った。術後7日目にプロテーゼの自己挿入を指導し退院となった。約3週間で形成した陰腔内はほぼ扁平上皮化しており、現在術後1年経過したが陰腔は狭小化や硬縮することなく良好な状態を保っている（図4）。

考 察

先天性陰欠損症は、約5,000人に1人の頻度で発生し、ミューラー管の発生異常により生ずる。機能性子宮を有することは稀で、その頻度は陰欠損症の約5%程度と報告されている¹⁾。二次性徴が正常であるが月経が発来せず、月経血の停留による周期的な下腹部痛を訴え診断されることが多い。機能性子宮を有する場合、周期的な下腹部痛のコントロールが可能であれば、保存的に経過をみながら手術の時期や方法を決定する。しかし、症状の発生から手術療法までの期間が長くな

ると、月経血の腹腔内逆流により子宮内膜症の頻度が高くなるため、比較的早期の治療が望まれる。

手術術式については、子宮機能の保持・妊孕性の温存が重要な課題となる。その予後は子宮頸部組織の有無によって異なり、下部腔欠損のみで子宮頸部組織が存在すれば子宮温存手術に加え腔形成術を行った症例が散見され、術後の妊娠症例も報告されている¹⁻³⁾。しかし子宮頸部組織が欠損している症例では、術後の合併症を考慮して、子宮を摘出し腔形成術を行うことが主である^{4,6)}。高後は、機能性子宮を有する腔および子宮頸部欠損症例に対し造腔造頸管術を行った症例を報告しているが、術後30日目に腔上部の癒着剥離術を要しており、上向感染や縫合不全、頸管閉鎖などのリスクが高いことが問題点として挙げられる⁷⁾。本症例では、MRIおよび腹腔鏡検査で子宮頸部欠損を術前に診断しており、子宮温存手術による術後の合併症を考え、本人と家族の希望により子宮全摘術を選択した。

造腔の方法としては、観血的治療として腸管・皮膚弁・腹膜を移植する方法、非観血的治療として圧迫・プロテアーゼを使用する方法が一般的に行われてきた。各造腔術後の成功率と術後合併症についての比較では、銘苅らによれば解剖学および機能的な成功率は観血的方法であれば96~100%と比較的良好であるが、合併症として直腸腔瘻や膀胱・直腸穿孔、腸管壊死、腹膜炎など危篤な合併症があり、リスクを伴う⁵⁾。近年では侵襲性と美容面を考慮し、腹腔鏡補助下の造腔術や、皮膚弁の代用として人工真皮であるアテロコラーゲン膜やゴアテックスを用いて粘膜欠損部を被覆する造腔法が報告されており、より低侵襲で美容性に優れた術式へと変遷している^{8,9)}。

酸化再生セルロース膜(インターシード®)を使用した造腔術は、MotoyamaらやInagakiらにより報告された低侵襲かつ簡便な造腔術式である^{10,11)}。腔前庭粘膜に切開を加えた後に鈍的に腔腔を作成し、酸化再生セルロース膜で覆ったプロテアーゼを腔腔内に挿入する方法であり、観血的ではあるが低侵襲な手術操作で腔腔を形成する。腔腔は約1~4か月で扁平上皮に置換され、正常婦人と近似するほど自然であり、2症例の報告ではあるが術後合併症の発生は見られていない。今回、我々はMotoyamaらやInagakiらと同様の方法に、腔粘膜のH字切開法やメトロイリーゼの使用など、工夫を加え造腔術を施行した。

造腔術後の腔腔長の維持については、観血的方法で

あるMcIndoe法やDavydof法で100%、96%と良好であるのに対し、非観血的方法のFrank法では61%であり、術後6か月後で腔腔長が不十分となり追加で観血的手術療法が施行されている¹²⁾。Frank法は最も低侵襲であり簡便な方法であるが、治療に長期間を有するにも関わらず十分な腔腔を確保することは困難である。本法はMcIndoe法で用いる皮膚弁の代用として酸化再生セルロースを使用する方法であり、観血的方法ではあるが侵襲度はその中でも最も低く、扁平上皮が完成するまでの期間に腔腔長が短縮しないようプロテアーゼによる管理を行った。術後のプロテアーゼ装着に関しては、プロテアーゼを使用しなくても腔の狭窄や短縮は起こらないという報告¹³⁾や、プロテアーゼを使用せずエストロゲン含有クリームを腔管に注入して腔管の狭窄を予防した症例が報告されている⁶⁾。しかし、プロテアーゼを使用することで扁平上皮による新生腔の再生が促進されることや、パートナーが存在しない場合には腔腔長の維持に有効であり、狭窄予防としても術後の後療法として広く用いられているのが実際である。今回、我々も術後7日目よりプロテアーゼの自己挿入を指導し、腔腔が扁平上皮化されるまでは連日、その後は就寝時の装着をするよう管理した。

人工真皮や酸化再生セルロース膜を用いた造腔方法では、腔腔の粘膜が扁平上皮化するには約1~4か月を要し、その間の腔内感染は肉芽の形成による腔内癒着を誘発する¹⁰⁾。細菌感染の予防方法としては、術後の抗生剤の静脈投与や抗生物質を浸透させたガーゼの腔内挿入^{4,14)}、ゲンタシンクリーム/軟膏の腔内注入など様々な工夫がなされている^{6,15)}。本症例では術後数日はゲンタシン軟膏をプロテアーゼに塗布して挿入、その後はプロテアーゼをイソジン消毒して使用することで新生腔腔内の感染予防に努め、術後の腔内感染は認めなかった。

本法は、今まで施行されてきた観血的造腔術と比較して侵襲性や技術的な難易度は低く、術後管理の容易さや合併症のリスクが低いということは、患者にとって利点の多い方法であると言える。造腔術が適応となる腔欠損症患者10~20代の女性にとっては美容性・機能性にも優れており推奨される術式と考えられた。

参考文献

- 1) Salvatore, C.A. and Lodovici, O. (1978) Vaginal agenesis : an analysis of ninety cases. *Acta Obstet.*

- Gynecol. Scand.*, **57**, 89-94.
- 2) Zarou, G.S., Esposito, J.M. and Zarou, D.M. (1973) Pregnancy following the surgical correction of congenital atresia of the cervix. *Int. J. Gynaecol. Obstet.*, **46**, 65-67.
 - 3) Chakravarty, B., Konar, H. and Chowdhury, N.N. (2000) Pregnancies after reconstructive surgery for congenital cervicovaginal atresia. *Am. J. Obstet. Gynecol.*, **183**, 421-423.
 - 4) 山田陽子, 江上りか, 野崎雅裕, 中野仁雄 (2005) 片側機能性内膜を有する頸管欠損分離子宮角に腔欠損症を合併した症例. 日産婦内視鏡学会 **21**, 189-192.
 - 5) 銘苺桂子, 安里こずえ, 屋宜千晶, 青木陽一 (2010) 腔欠損症に対して腹腔鏡補助下造腔術 (Davydov 変法) を施行した 1 例. 日産婦内視鏡学 **26**, 418-21.
 - 6) 小林麻美, 福井淳史, 船水文乃, 福山麻美, 福原理恵, 水沼英樹 (2011) 子宮頸部低形成・腔欠損に対し腹腔鏡補助下子宮経管開口術・腔形成術を施行した一例. 青森臨産婦誌 **26**, 30-36.
 - 7) 高後裕匡, 藤本俊郎, 光部兼六郎, 岩城雅範, 大中吉人 (2000) 機能性子宮を持つ先天性腔欠損症の 1 例. 苫小牧市立病院医誌 **14**, 37-40.
 - 8) 古谷健一, 永田一郎, 新井克志, 菊池義公 (2004) Rokitansky-Küster-Hauser 症候群における造腔術: 各種造腔術の比較と人工真皮を用いた新しい造腔術の試み. 産婦手術 **15**, 27-35.
 - 9) 平松裕司, 三橋直樹, 長田尚夫, 落合和彦, 滝澤憲, 福地 剛, 塩田 充, 増山 寿, 星合 昊 (2004) 人工真皮の種類と人工造腔術への応用. 産婦手術 **15**, 123-128.
 - 10) Motoyama, S., Laoag-Fernandez, J.B., Mochizuki, S., Yamabe, S. and Maruo, T. (2003) Vaginoplasty with Interceed absorbable adhesion barrier for complete squamous epithelization in vaginal agenesis. *Am. J. Obstet. Gynecol.*, **188**, 1260-1264.
 - 11) Inagaki, M., Motoyama, S., Laoag-Fernandez, J.B., Yasuda, R. and Maruo, T. (2009) Two case reports of less invasive surgery using intercede (Oxidized regenerated cellulose) absorbable adhesion barrier for vaginoplasty in Meyer-Rokitansky-Küster-Hausser syndrome. *Int. Surg.*, **94**, 48-53.
 - 12) Jasonni, V.M., La Marca, A., Naldi, S., Matonti, G. and D'Anna, R. (2007) The management of vaginal agenesis: report of 104 cases. *Fertil. Steril.*, **88**, 1653-1656.
 - 13) Fedele, L., Bianchi, S., Frontino, G., Berlanda, N., Montefusco, S. and Borruto, F. (2008) Laparoscopically assisted uterovestibular anastomosis in patients with uterine cervix atresia and vaginal aplasia. *Fertil. Steril.*, **89**, 212-216.
 - 14) 田坂慶一, 雨宮京夏, 甲村弘子, 三宅 侃, 谷澤修 (1994) 先天性腔欠損症に対する各種手術法の検討. 産婦人科手術 **4**, 107-112.
 - 15) 本山 覚 (2004) 再生酸化セルロース膜 (インターシード) を応用した低侵襲性造腔術. *Acta Obst. Gynaec. Jpn.*, **56**, 1353-1359.