

臍帯嚢胞を認め、高次医療機関と連携することにより 二次医療機関で分娩可能であった尿膜管開存症の1例

平井雄一郎・小西 晴久・張本 姿・綱掛 恵・藤本 英夫

市立三次中央病院 産婦人科

A case of patent urachus with an umbilical cord cyst that could be delivered at a secondary medical institution in cooperation with a higher medical institution

Yuichirou Hirai · Haruhisa Konishi · Shina Harimoto · Megumi Tsunakake · Hideo Fujimoto

Department of Obstetrics and Gynecology, Miyoshi Central Hospital

臍帯嚢胞は尿膜管遺残や染色体異常との関連がみられる稀な先天異常である。胎児超音波検査で臍帯嚢胞を認め、出生後に尿膜管開存と診断した1例を経験したので報告する。症例は24歳、G2P1。前医にて妊娠20週の妊婦健診時に臍帯に嚢胞を指摘され、当科を紹介受診した。胎児超音波検査では胎児腹腔外の腹壁に接するように44mm大の嚢胞を認め、血管走行から臍帯嚢胞と診断した。妊娠21週に高次医療機関でも超音波による精査をしたが、臍帯嚢胞のほかには明らかな胎児奇形を認めず、以降の周産期管理は当科で行う方針とした。妊娠30週の胎児超音波検査では嚢胞は69mmと拡大、また膀胱が臍部と連続する像を認め、尿膜管開存症を疑った。それ以降の健診では臍帯嚢胞は縮小傾向となり、妊婦も当院での経膈分娩を希望したため、小児科と相談の上、経膈分娩の方針とした。妊娠38週2日に自然破水し、同日経膈分娩した。児は体重3215g、身長46.8cm、男児、Apgar Score 1分後9点、5分後9点、臍帯動脈血pH7.303であった。児の臍基部には5cmの漿液性の嚢胞を認め、その周囲を約15cmの膠質が囲っていた。膀胱造影では、造影剤の臍帯への逆流を認め、尿膜管開存と診断した。手術のため高次医療機関へ転院となり、日齢3日で尿膜管切除術施行された。臍帯嚢胞を認めた場合は、出生後の円滑な診断・治療のために染色体異常や胎児奇形を鑑別に挙げ、産科、小児科、小児外科の連携が重要である。本症例においては、出生前より小児科、高次医療機関との連携を行うことで、尿膜管開存を伴う臍帯嚢胞合併妊娠の周産期管理が可能であった。また、当院のような二次医療機関での健診・出産は、妊婦の通院の負担軽減や陣発時の対応等をより迅速・柔軟に行うことができるなど多くのメリットがあったと考えている。

Umbilical cord cysts are rare anomalies associated with urachal remnants and chromosomal abnormalities. We report a case of an umbilical cord cyst detected on fetal ultrasonography that was diagnosed as a patent urachus after birth. Routine obstetric ultrasonography revealed an umbilical cord cyst at 20 weeks of gestation. We referred the patient to a higher medical institution where they found no malformations, except for the umbilical cord cyst. Ultrasonography at 31 weeks of gestation showed continuity of the urinary bladder with the umbilicus, so we suspected a patent urachus. Subsequently, the umbilical cord cyst started to shrink. The patient wanted a vaginal delivery and male infant was thus delivered at 38 weeks of gestation. He was noted to have an umbilical cord cyst surrounded by colloid tissue. Cystography revealed a patent urachus. He was referred to a higher medical institution for surgery. When an umbilical cyst is found, it is necessary to consider chromosomal abnormalities and fetal malformations to ensure smooth diagnosis and treatment after birth. In addition, close coordination between obstetrics, pediatrics, and pediatric surgery is important for detailed treatment. Pregnancy checkups and delivery at secondary medical institutions have many benefits for pregnant women.

キーワード：臍帯嚢胞、尿膜管開存、超音波診断、出生前診断

Key words : umbilical cord cyst, patent urachus, ultrasound diagnosis, prenatal diagnosis

緒 言

胎児超音波検査により出生前にさまざまな臍帯異常を見つけることが可能となっており、それらのひとつとして臍帯嚢胞がある。臍帯嚢胞は染色体異常や尿膜管開存に伴うことがある稀な先天異常である。今回我々は、胎児超音波検査において臍帯嚢胞から尿膜管開存症を疑

い、出生後に確定診断した1例を経験したので報告する。

症 例

患者：20歳代、G2P1
既往歴：特記事項なし
家族歴：父 糖尿病

現病歴：自然妊娠成立後、近医産婦人科にて妊婦健診を受けていた。妊娠20週の妊婦健診時に臍帯の一部に嚢胞を指摘され、妊娠20週4日に当科を紹介受診した。

胎児超音波検査：胎児腹腔外の腹壁に接するように44mm大の嚢胞を認めた。嚢胞内部には血流を認めず、周囲には臍帯血管と思われる血管を認めたため臍帯嚢胞と診断した。その他には明らかな形態異常を認めず、胎児発育は週数相当で、羊水量も正常範囲内であった。

妊娠経過：妊娠21週に高次医療機関で精査したが、臍帯嚢胞の診断で、その他の胎児奇形を認めず、以降の管理も当科で行う方針とした。なお、当院は、高次医療機関まで90～120分程度の時間を要する場所に位置している。

妊娠25週の胎児超音波検査では嚢胞サイズ55mmと拡大を認めた。妊娠28週での高次医療機関での胎児超音波検査では嚢胞サイズ50mm程度と大きな変化は認めず、

妊娠30週の当院での胎児超音波検査では69mmと嚢胞サイズの拡大を認めた(図1-A)。その際に膀胱が臍部と連続する像を認め、尿膜管開存症を疑った(図1-B)。

妊娠34週には嚢胞サイズ40mmと縮小傾向で、同日精査目的に施行した単純MRI検査においても同様に胎児腹側に約3cmの嚢胞とともに胎児膀胱が臍部に引き込まれる形態を認め、臍帯嚢胞と尿膜管開存症の併発が疑われた(図2-A, B)。いずれの妊婦健診でも臍帯動脈血流は嚢胞の胎児側、胎盤側でも特に違いは見られなかった。また羊水量も正常であった。臍帯嚢胞のサイズは縮小傾向であり、妊婦も経膈分娩を希望し、他科・他院との連携をとりやすい計画分娩の方針とし、妊娠38週5日に誘発分娩を予定した。しかし、妊娠38週2日に自然破水し、同日経膈分娩で出生した。児は体重3215g、身長46.8cmの男児で、Apgar Score 1分後9点、5分後9

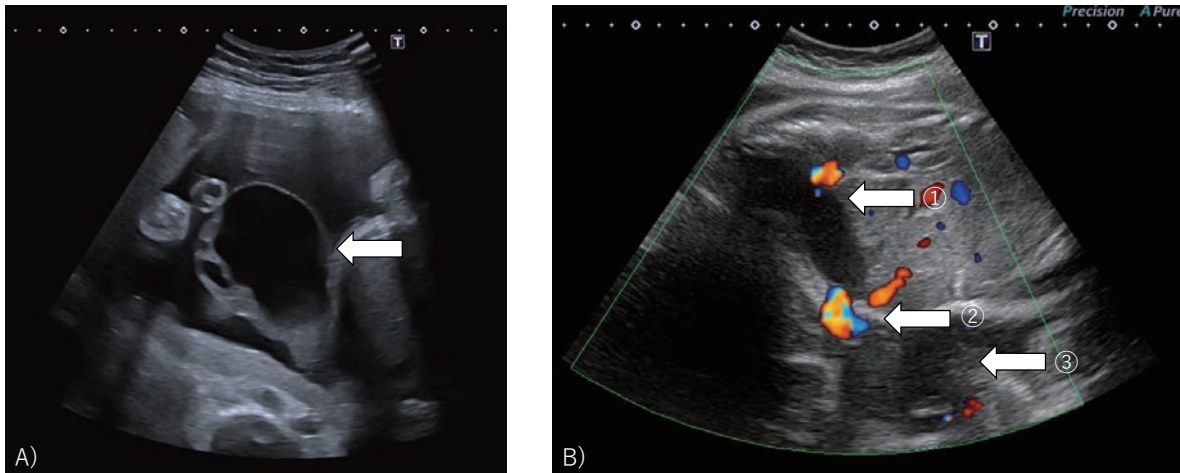


図1 妊娠30週 胎児超音波検査所見

- A) 胎児腹壁に接する69mm (矢印) の嚢胞を認めた。
B) 膀胱 (矢印①) が臍部 (矢印②) を介して臍帯嚢胞 (矢印③) と連続する像を認めた。

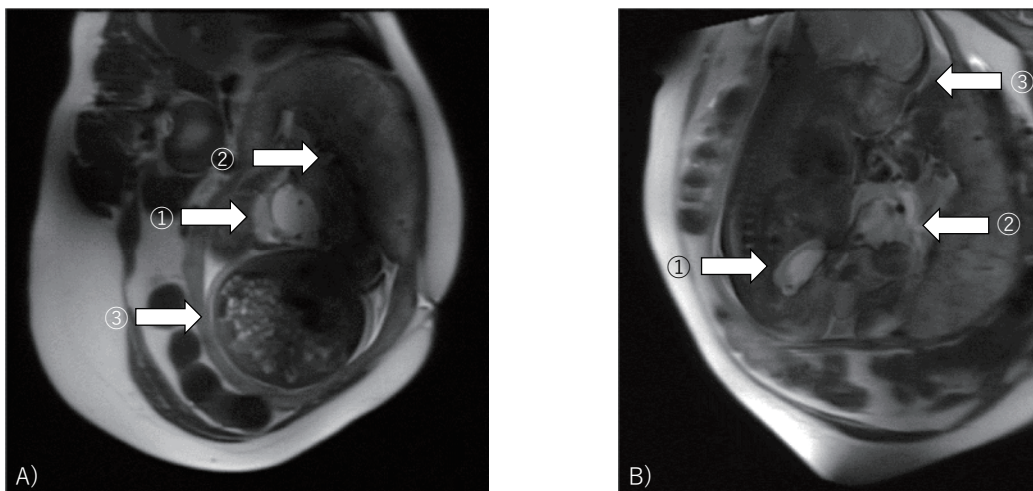


図2 妊娠34週 胎児MRI所見

- A) T2強調画像 胎児水平断 胎児腹側に約3cmの嚢胞を認めた。
矢印①嚢胞 矢印②胎盤 矢印③児腹部
B) T2強調画像 胎児矢状断 胎児の膀胱が臍部へ引き込まれる形態を認めた。
矢印①膀胱 矢印②嚢胞 矢印③児頭

点、臍帯動脈血pH7.303で、精査加療目的に小児科入院となった。

新生児所見：娩出時の児の臍基部には5cmの漿液性の嚢胞を認め、嚢胞内は黄色漿液性の液体成分と考えられた。また、その周囲を約15cmの膠質が囲っていた(図3)。臍帯嚢胞以外は胎児には明らかな外表奇形を認めなかった。胎児超音波検査では膀胱の形に明らかな異常

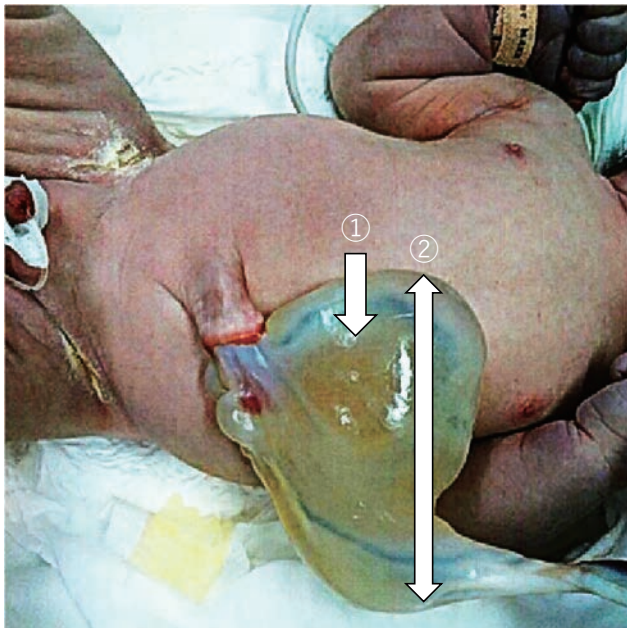


図3 出生時の臍帯嚢胞

臍基部には5cmの黄色漿液性の嚢胞(矢印①)を認め、その周囲を約15cmの膠質(矢印②)が囲っていた。

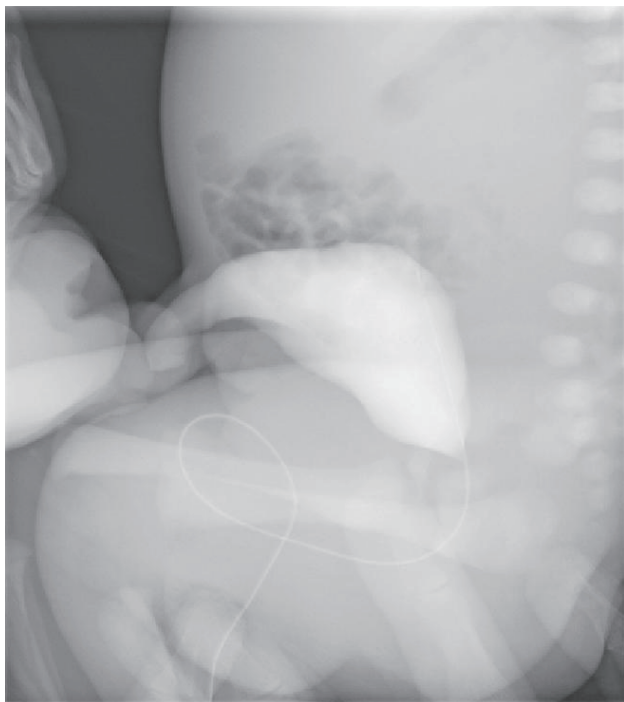


図4 出生当日の膀胱造影所見
膀胱頂部から臍帯への造影剤の流出を認めた。

を認めず、臍帯との連続性ははっきりしなかったが、膀胱造影検査では、造影剤の臍帯への逆流を認め、尿膜管開存と診断した(図4)。嚢胞破裂による感染リスクもあることから紹介予定先の小児外科と相談し、同日新生児搬送となった。転院先にて日齢3日で尿膜管切除術が施行され、術後経過は良好で日齢18日で退院となった。生後1か月健診は当院で行い、小児外科の再診は術後6か月の予定である。臍帯嚢胞の病理組織検査では移行上皮で被覆された尿膜管の遺残が認められた。

考 察

臍帯嚢胞は、妊娠第1三半期では全妊婦の3%に認め、ほとんどの嚢胞は自然消失する¹⁾。しかし、妊娠第2三半期以降にも認められた場合、胎児の形態異常や染色体異常を高率に合併すると言われている¹⁾。また、妊娠経過中には臍帯嚢胞の破裂や圧迫による臍帯血流障害をもたらす胎児心拍異常をきたしたとする報告が散見され、慎重な管理が必要である^{2) 3)}。臍帯嚢胞は臍帯の胎児附着部付近に認めることが多く、病理組織学的には嚢胞内腔が上皮により被覆された真性嚢胞と、上皮を有さない仮性嚢胞に分類される¹⁾。真性嚢胞は尿膜管遺残や卵黄腸管遺残から発生することが多く、一方で仮性嚢胞はWharton膠質の浮腫や変性、あるいは胎児尿の逆流により発生し、18トリソミー、13トリソミーなどの胎児染色体異常や横隔膜ヘルニアや脊椎欠損、鎖肛などの胎児奇形との関連が報告されている^{1) 2) 4) - 6)}。胎児期における画像診断では、真性嚢胞と仮性嚢胞といった病理学的な鑑別は困難であり、臍帯嚢胞を認めた場合は、上記に挙げた染色体異常や胎児奇形を鑑別に挙げ管理し、出生後の円滑な診断・治療を行うために産科、小児科、小児外科の連携が重要である。

尿膜管遺残は、10万人に1~2.5人の発生頻度で認められる稀な疾患である⁷⁾。尿膜管は胎生期に臍と膀胱頂部とを交通する構造物であり、通常胎生8~10週頃までに閉鎖し、正中臍ヒダと呼ばれる索状物として残存するが、その過程が障害された場合に尿膜管遺残となる³⁾。尿膜管遺残はMacNeily et al.の分類によるとその遺残形態により尿膜管開存、尿膜管洞、尿膜管性膀胱、尿膜管嚢胞などに分類される⁸⁾。尿膜管開存の場合には臍部から尿排泄があり早期に根治術の対象となるが、出生直後の対応が生命予後にはあまり関与しない。尿膜管洞や尿膜管嚢胞は、感染を認める場合には感染の軽快後に尿膜管摘除術が適応となる⁹⁾。尿膜管遺残は、妊娠中に臍帯嚢胞を呈する場合があります。本邦における臍帯嚢胞を認めた尿膜管遺残の報告11例をまとめた論文では、平均妊娠21.6週で臍帯嚢胞を指摘され、嚢胞の最大径は平均51mmで、多くの症例で妊娠経過中に増大傾向を認めている。臍帯嚢胞が増大する理由としては、胎児尿の産生

増加と関連していると考えられている³⁾。本症例は、妊娠20週で44mmの臍帯嚢胞を認め、30週で69mmまで緩徐に増大し、その後縮小傾向となり、最終的に出生時は50mmの嚢胞を認めた。妊娠30週以降縮小傾向となった原因は不明であるが、これまでの報告でも同様の経過は認められている^{2) 3)}。今回尿膜管開存を出生前に診断し得た所見として胎児超音波検査及びMRIでの膀胱頂部と臍帯の連続性を示唆する所見があげられる(図1, 2)。これまでの報告でもMRIで膀胱から臍に向かって、尿膜管が連続した構造物として指摘されている症例が報告されているが多くは妊娠30-35週でのMRI検査が施行されている^{2) 4)}。本症例も、妊娠30週から超音波画像検査及び妊娠34週でのMRIで同様の所見を認めており、尿膜管開存の診断可能時期として今後同様の症例管理を行う際の参考になると思われる。

胎児期に臍帯嚢胞を認めた場合の分娩方法に関して一定の基準はないが、分娩時の臍帯部の圧迫・捻転・破裂による臍帯血流障害が危惧され、選択的帝王切開が選択される症例が多く、実際妊娠31週で変動一過性徐脈を認め、管理入院した報告もある^{2) 3)}。しかし、経陰分娩されている症例も複数報告されており^{3) 10)}、症例ごとに十分に検討を行い、分娩方法を決定する必要がある。本症例では、児の発育は順調で明らかな奇形の合併がないこと、臍帯嚢胞は縮小傾向であること、当該妊婦の家庭環境を考慮して妊婦健診や分娩時に通院が容易な当院での経陰分娩を強く希望していること、尿膜管開存の場合でも出生直後に超緊急の対応は不要であることなどから、分娩時の臍帯血流障害や出生後の新生児搬送の可能性を説明したうえで、当院で経陰分娩の方針とした。本症例は分娩時に軽度変動一過性徐脈を認めたのみで、特記すべき問題なく経陰分娩された。

今回我々は、胎児超音波検査において臍帯嚢胞から尿膜管開存症を疑い、出生後に確定診断した1例を経験した。当院は二次医療機関で、出生後に小児外科のある高次医療機関への搬送を要したが、高次医療機関へ90~120分程度の時間を要する場所に位置している。しかし、出生前より小児科と連携し、周産期管理を行っていたため、出生後の尿膜管開存の診断から搬送・手術までを円滑に行うことが可能であった。高次医療機関と連携をとりながら妊婦健診を行うことで、「地域でお産したい」という妊婦およびその家族の思いに答え、遠方の高次医療機関への通院の負担を軽減し、陣発時の対応等をより迅速・柔軟に行うことができるなど、多くのメリットがあったと考えている。

謝 辞

本症例の診療にご尽力いただきました当院小児科、県立広島病院総合周産期母子医療センターおよび小児外科

スタッフの皆様に深謝いたします。

文 献

- 1) Diana WB, Timothy MC, Mary ED, Fergal DM. 臍帯異常. 宗田聡監訳, 佐村修翻訳. ニューイングランド周産期マニュアル, 改訂2版. 東京: 南山堂, 2011; 910-915.
- 2) 加藤宏章, 阿部恵美子, 矢野晶子, 吉田文香, 阿南春分, 上野繁, 池田朋子, 田中寛希, 森美妃, 近藤裕司, 越智博. 臍帯嚢胞から尿膜管開存を診断し得た一例. 現代産婦人科 2018; 67: 239-242.
- 3) 升井大介, 深堀優, 愛甲崇人, 鶴久士保利, 東館成希, 橋詰直樹, 七種伸行, 石井信二, 田中芳明, 八木実. 胎児期に臍帯嚢胞を指摘され、出生後に尿膜管開存症と診断された一例. 日小外会誌 2018; 54: 1357-1362.
- 4) 納所洋, 植村貞繁, 牟田裕紀, 久山寿子, 山本真弓, 吉田篤史, 渡部茂. 胎児MRIで臍帯嚢胞を認めた尿膜管開存症の1例. 日小外会誌 2012; 48: 961-964.
- 5) Sepulveda W, Gutierrez J, Sanchez J, Be S, Schnapp C. Pseudocyst of the umbilical cord: Prenatal sonographic appearance and clinical significance. Obstet Gynecol 1999; 93: 377-381.
- 6) 松原正和, 吉田順子, 甲藤一男. 巨大臍帯真性嚢胞を認め帝王切開術により正常児を得た1例. 日産婦関東連会誌 2004; 41: 337-341.
- 7) 堀越嗣博. 臍帯嚢胞および臍帯潰瘍. 周産期医学 2019; 49: 95-97.
- 8) MacNeily AE, Koleilat N, Kiruluta HG, Homsy YL. Urachal abscesses: protean manifestations, their recognition, and management. Urology 1992; 40: 530-535.
- 9) 岸陽子, 菊地健太, 大串健二郎, 長谷川真理子, 五十嵐昭宏, 畑中政博, 藤野順子, 池田均. 待機的尿膜管摘除術の適応に関する検討. 日小外会誌 2018; 54: 236-241.
- 10) 笹澤智聡, 品川光子, 窪田文香, 藤井由起子, 山田香織, 高木緑, 戸田文香, 高木靖. 経陰分娩し得た仮性臍帯嚢胞の一例. 関東連合産科婦人科学会誌 2012; 49: 327-327.

【連絡先】

平井雄一郎
市立三次中央病院産婦人科
〒728-8502 広島県三次市東酒屋町 10531 番地
電話: 0824-65-0101 FAX: 0824-65-0150
E-mail: ag11415098@yahoo.co.jp