

胎児超音波検査にて臍帯嚢胞を指摘され、出生後に尿膜管開存症と診断した一例

福井 理仁¹⁾・片山 幸子¹⁾・木内 理世¹⁾
山本 哲史¹⁾・古本 博孝¹⁾・石橋 広樹²⁾

1) 徳島市民病院 産婦人科

2) 徳島大学病院 小児外科・小児内視鏡外科

A case of urachus with an umbilical cyst identified on fetal ultrasonography diagnosed after birth

Rijin Fukui¹⁾・Sachiko Katayama¹⁾・Riyo Kinouchi¹⁾
Satoshi Yamamoto¹⁾・Hiroyuki Furumoto¹⁾・Hiroki Ishibashi²⁾

1) Department of Obstetrics & Gynecology, Tokushima municipal Hospital

2) Department of Pediatric Surgery and Pediatric Endoscopic Surgery, Tokushima University Hospital

妊娠中期の胎児超音波検査にて臍帯嚢胞が認められ、出生後に尿膜管開存症と診断し、根治手術を施行した症例を報告する。症例は32歳、G2P0。前医にて妊娠17週に、臍帯嚢胞を指摘されていた。妊娠20週における当科での胎児超音波検査では、臍帯基部に21mm大の嚢胞を認め、臍帯血管のカラードプラ検査などから、臍帯嚢胞が考えられた。また嚢胞と胎児膀胱間には、非常に細い管状構造を認め、尿膜管開存症が疑われた。嚢胞径は妊娠35週までは漸増したが、妊娠37週に嚢胞が認められなくなった。その他の胎児異常などは認めなかった。妊娠41週に経膈分娩となり、児は体重3585 g、女児、Apgar Score 1 分後8点、5分後9点。臍帯動脈血pH7.206であった。臍帯に嚢胞は認めなかったが、臍帯基部に赤色組織を認め、その周囲から漿液性浸出液の漏出を認めた。児は精査のために日齢2日目に、小児外科のある高次医療機関へ転院となり、膀胱造影で尿膜管開存症と診断され、日齢11日目に尿膜管切除術が施行された。その後の経過は順調で、日齢15日目に退院となった。胎児臍帯嚢胞を認めた場合は本疾患を想定し、出生後管理を円滑に行える治療計画作成が重要と考える。

We report a case in which an umbilical cord cyst was found on fetal ultrasonography in the second trimester of pregnancy, the patient's urachus was diagnosed after birth, and radical surgery was performed. An umbilical cord cyst was identified at another clinic at 17 weeks of gestation. Fetal ultrasonography and color Doppler examination at our department at 20 weeks of gestation revealed an umbilical cord cyst. A very thin lumen was found between the cyst and the fetal bladder, and a patent urachus was suspected. The cyst diameter gradually increased until 35 weeks of gestation but disappeared at 37 weeks of gestation. No other fetal abnormalities were observed. At 41 weeks of gestation, a female infant weighing 3585 g was delivered vaginally. Red tissue was observed at the base of the umbilicus, from which a small amount of serous exudate was found. She was transferred to a higher medical institution for scrutiny, diagnosed with patent urachus by cystography, and underwent urachal resection 11 days after birth. The patient was discharged from the hospital on day 15. On observation of umbilical cord cysts, a patent urachus may be suspected, and postnatal treatment plans may be facilitated.

キーワード：臍帯嚢胞、尿膜管開存、出生前診断

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

緒 言

胎児の臍帯嚢胞は、胎児超音波検査で発見することが可能な疾患である。そして臍帯嚢胞を認めた場合は、尿膜管開存症、臍帯ヘルニア、臍帯静脈瘤、染色体異常などを考慮する必要がある。今回我々は、妊娠中期の胎児超音波検査で臍帯嚢胞を認め、出生後に尿膜管開存症と確定診断し、外科的根治術を施行した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：32歳、G2P0

既往歴・家族歴：特記すべきものなし

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17週の妊婦健診時に、臍帯基部（胎児側）に20mm大の嚢胞が認められたため、妊娠20週1日に当科を紹介受診となった。

当科での胎児超音波検査：妊娠20週1日の超音波検査（図1）では臍帯基部（胎児側）に、胎児腹壁に接する

ような単房性嚢胞を認めた。嚢胞は $21 \times 20 \text{ mm}$ の大きさであり、内部は均一で胎児膀胱と同様のエコー輝度であり、消化管などの存在は認めなかった。またカラードプラーでは嚢胞周囲を走行する臍帯動静脈を確認でき、嚢胞が臍帯静脈瘤などではないことを確認した。妊娠22週1日の超音波検査(図2)では、嚢胞径は $26 \times 22 \text{ mm}$ と増大しており、また嚢胞と胎児膀胱間に非常に細い管状構造を認めた。これらの所見から尿膜管開存症が疑われた。また胎児膀胱径の変化(膀胱周期)に伴う、嚢胞径の明確な変化は確認できなかった。

妊娠・分娩経過:その後、妊娠35週まで嚢胞サイズの漸増(最大 $32 \times 25 \text{ mm}$)を認めていたが、妊娠37週4日の超音波検査では嚢胞を認めることができなくなった。またこの観察期間中に、他の胎児異常や羊水量異常、また胎児臍帯血流異常なども認めなかった。嚢胞の自然破裂も考えられたが、患者側との話し合いの上で経膈分娩を選択した。その後妊娠41週3日に自然陣痛発来し経膈分娩に至った。児は女児、体重 3585 g 、Apgar Score 1分後8点、5分後9点、臍帯動脈血 $\text{pH} 7.206$ であった。

新生児所見:児の臍帯基部には赤色組織の露出を認め(図

3)、嚢胞は認めなかったことより胎内での破裂が考えられた。また赤色組織の周囲から無色透明の漿液性浸出液の漏出が認められた。尿膜管開存症を考え、日齢2日目に小児外科のある高次医療機関へ紹介転院とした。高次医療機関での管理:日齢2日目に施行した膀胱造影検査では(図4)、膀胱頂部から臍への造影剤流入を認め、尿膜管開存症と診断された。日齢11日目に尿膜管切除術が施行された(図5)。摘出組織の病理組織検査では、移行上皮に被覆された管腔構造を認め、尿膜管として矛盾しない所見であった。児は術後経過順調で日齢15日目(術後4日目)に退院し、術後30日目の創部は目立った瘢痕を残さず、経過良好である(図6)。

考 案

胎児の臍帯嚢胞は稀な異常であり、第1三半期には約3%に見られるとされているが、その多くは自然消失する¹⁾。しかし第2三半期以降もみられるものには、染色体異常や奇形などの合併が高まるといわれている²⁾。臍帯嚢胞は病理学的には嚢胞を裏打ちする上皮を有さないものが仮性嚢胞、有するものが真性嚢胞と分類され、

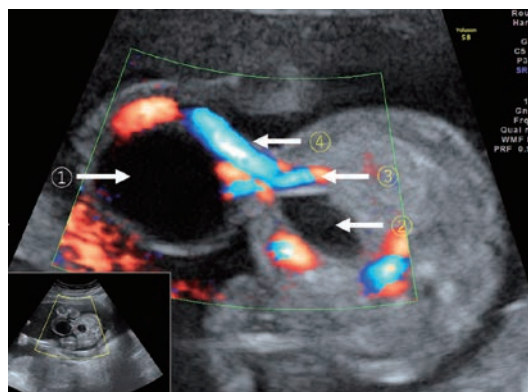


図1 妊娠20週1日 胎児超音波検査所見
矢印①臍帯嚢胞 矢印②膀胱
矢印③臍帯動脈 矢印④臍帯静脈



図2 妊娠22週1日 胎児超音波検査所見
矢印①臍帯嚢胞 矢印②膀胱 矢印③管腔様構造

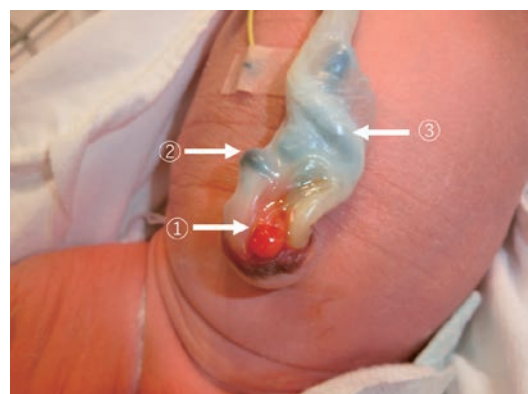


図3 出生児所見
臍帯嚢胞は認めず、赤色組織(矢印①)を認め、その周囲から漿液性浸出液漏出を認める。矢印②臍帯動脈 矢印③臍帯静脈



図4 日齢2日目の膀胱造影所見
膀胱頂部から臍への造影剤流入を認める

仮性嚢胞の方が真性嚢胞より遥かに高頻度であるとされる¹⁾。仮性嚢胞はWharton膠質の浮腫によるものといわれており、18 trisomyや13 trisomyなどの染色体異常や、臍帯ヘルニア（hernia into the umbilical cordが多い³⁾）などの胎児異常との関連が報告されている²⁾。真性嚢胞には尿膜管に由来する尿膜管嚢胞や、臍腸管に由来する卵黄腸管嚢胞などもある¹⁾。胎内で臍帯嚢胞を認

めた場合は、この仮性・真性嚢胞、臍帯ヘルニアやさらには臍帯静脈瘤なども念頭に置いた検索が必要となる。本症例においては妊娠20週1日の胎児超音波検査で、臍帯嚢胞内に消化管が存在しないこと、またカラードプラにて臍帯嚢胞周囲を走行する臍帯動静脈を確認していることから、臍帯ヘルニアと臍帯静脈瘤が否定された。そして妊娠22週1日の胎児超音波検査では、臍帯嚢胞と胎

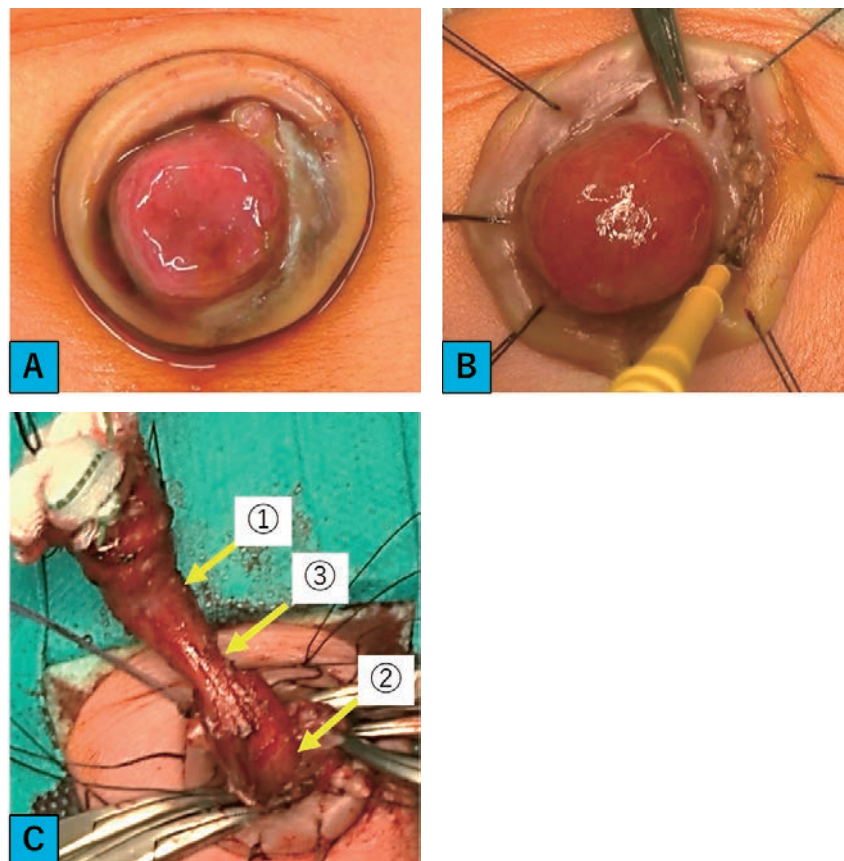


図5 日齢11日目、尿膜管切除術時の所見

- A：臍帯は脱落し赤色の粘膜部分を認め、尿膜管開口部と思われるpinholeも認められた
 B：円形の皮膚切開を加えた
 C：尿膜管（矢印①）を牽引し、膀胱（矢印②）との境界（矢印③）を明らかとし、この部位で切離した



図6 術後30日目の創部所見
目立った瘢痕を残さず、経過良好

児膀胱の間に管状構造を認めたことから、尿膜管開存症を疑った。ただし尿膜管は非常に小さい構造物なので⁴⁾、胎児超音波検査のみで尿膜管開存症を診断確定することは困難である。また胎児MRIを胎内診断に用いた尿膜管開存症の報告では⁵⁾、臍帯嚢胞と臍帯浮腫の存在や、胎児膀胱頂部の臍帯方向への突出などは確認できているが、臍帯と胎児膀胱との連続性を証明するまでには至っていない。また我々の症例（本症例）では、膀胱周期に伴う臍帯嚢胞径の経時的变化を観察したが、胎児排尿による臍帯嚢胞の増大を確認することはできず、膀胱から臍帯嚢胞への尿の流れは証明できなかった。本症例では日齢2日目の膀胱造影検査にて、MacNeilyの尿膜管遺残症分類⁶⁾における尿膜管開存症であることが確認され、あくまでも出生後の膀胱造影検査による診断確定が必要であると思われた。

臍帯嚢胞症例の分娩様式であるが、臍帯嚢胞周囲の臍帯血管圧迫による臍帯血流低下が、胎児機能不全を惹起することへの危惧から、帝王切開が選択されることがある。実際、臍帯嚢胞の圧迫によると思われる臍帯動脈血流異常と、引き続き高度遷延性徐脈の発生による緊急帝王切開症例も報告されている。また臍帯嚢胞径が大きい方が、臍帯血管圧迫の程度は強いと思われるが、帝王切開の適応基準となる臍帯嚢胞径は不明である。そして臍帯嚢胞の自然退縮例などでは、経膈分娩の選択例もみられる⁷⁾。本症例においては、妊娠37週の胎児超音波検査で臍帯嚢胞を認めなくなり、患者側と十分な話し合いのうえ経膈分娩を選択した。結果的には嚢胞の胎内自然破裂であると思われたが、経膈分娩中に胎児機能不全等は発生しなかった。臍帯嚢胞の経膈分娩症例報告は少ないので、その分娩経過についての予測は難しいが、分娩開始後の嚴重な胎児監視と、急速遂娩の準備は必要であると思われる。

出生後の管理であるが、臍帯嚢胞そのものは出生直後に児の生命を危うくするものではなく、また嚢胞破裂を認めた場合は感染に留意しつつ管理し、確定診断を行うという方針でよいと考えた。本症例の出生後には嚢胞を肉眼的に確認できず、臍帯基部には赤色組織を認めた。結果的にこの赤色組織は露出した尿膜管であり、嚢胞部分は胎内での破裂が考えられた。またその赤色組織の周囲に見られた漿液性浸出液は、児尿であると思われた（生化学検査は行わなかった）。これらの肉眼所見は、諸家の尿膜管開存症例報告にみられるものに類似しており^{8) 9)}、引き続き膀胱造影検査による診断確定と手術療法へと進むことになる。当院には小児外科がないために、近隣の高次医療機関への紹介・転院となった。本症例に関しては胎児期より、尿膜管開存症の可能性を同高次医療機関の小児科や小児外科等と情報共有していたため、出生後のスムーズな連携のもとに児の転院、検査と

手術が行われた。

結 語

本症例のような胎児臍帯嚢胞を認めた場合は、その他の胎児異常の有無、嚢胞径の変化、臍帯血流異常の有無などの検索を行い、患者側との十分な話し合いのうえで分娩様式を決定する必要がある。また尿膜管開存症を念頭に置き、出生後に児の他科管理が円滑に行われるように、医療機関同士の連携を確立しておくことが重要である。

文 献

- 1) Ross JA, Jurkovic D, Zosmer N, Jauniaux E, Hackett E, Nicolaides KH. Umbilical cord cysts in early pregnancy. *Obstet Gynecol* 1997; 89: 442-445.
- 2) Sepulveda W, Gutierrez J, Sanchez J, Be C, Schnapp C. Pseudocyst of the umbilical cord: prenatal sonographic appearance and clinical significance. *Obstet Gynecol* 1999; 93: 377-381.
- 3) 浜島昭人, 鈴木則夫, 高橋篤, 黒岩実, 池田均, 土田嘉昭. 臍帯ヘルニアを合併した尿膜管開存の2例 整容的に有用な臍形成術の同時施行による治療. *日小外会誌* 1999; 35(1): 51-57.
- 4) 牟田裕紀, 小高明雄, 井上成一朗, 側島久典, 田村正徳, 馬場一憲. 巨大臍帯嚢胞をきっかけに発見された尿膜管開存症の一例. *日本周産期・新生児医学会雑誌* 2015; 51(4): 1270-1274.
- 5) 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(6): 961-964.
- 6) MacNeily AE, Koleilat N, Kiruluta HG, Homsey YL. Urachal abscesses: protean manifestations, their recognition, and management. *Urology* 1992; 40: 530-535.
- 7) 平井雄一郎, 小西晴久, 張本姿, 綱掛恵, 藤本英夫. 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. *現代産婦人科* 2020; 69(2): 229-232.
- 8) 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出生前診断し得た一例. *現代産婦人科* 2018; 67(2): 239-242.
- 9) 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と診断された1例. *日小外会誌* 2018;

54(7) : 1357-1362.

【連絡先】

福井 理仁

徳島市民病院産婦人科

〒770-0812 徳島県徳島市北常三島町2丁目34番地

電話：088-622-5121 FAX：088-622-5313

E-mail：fukui.rijin@hosp.tokushima.tokushima.jp