

小児期に膀胱外反症に対する修復術既往があり，子宮底部横切開を必要とした妊婦の一例

福武功志朗¹⁾・塚原 紗耶¹⁾・中原 康雄²⁾・杉原 百芳¹⁾
甲斐 憲治¹⁾・大岡 尚実¹⁾・吉田 瑞穂¹⁾・沖本 直輝¹⁾
政廣 聡子¹⁾・熊澤 一真¹⁾・多田 克彦¹⁾

1) 独立行政法人国立病院機構岡山医療センター 産婦人科
2) 独立行政法人国立病院機構岡山医療センター 小児外科

A case of a pregnant woman who had a history of repair surgery for bladder exstrophy in childhood and required a transverse uterine fundal incision

Koshiro Fukutake¹⁾・Saya Tsukahara¹⁾・Yasuo Nakahara²⁾・Momoka Sugihara¹⁾
Kenji Kai¹⁾・Naomi Ooka¹⁾・Mizuho Yoshida¹⁾・Naoki Okimoto¹⁾
Satoko Masahiro¹⁾・Kazumasa Kumazawa¹⁾・Katsuhiko Tada¹⁾

1) Department of Obstetrics and Gynecology, National Hospital Organization, Okayama Medical Center
2) Department of Pediatric surgery, National Hospital Organization, Okayama Medical Center

膀胱外反症は泌尿生殖器及び下腹部腹壁の再建を要する先天性疾患であるが，妊孕性を有し，健常児を得ることが可能である。今回，膀胱外反症根治術後に通常の帝王切開が施行できなかつたため子宮底部横切開法を行った一例を経験した。症例は30歳，3妊0産。膀胱外反症に対して，生後9ヶ月時に腸骨骨切り術と膀胱尿道形成術を，18歳時に膀胱摘出，代用膀胱を用いた尿路形成術，腔口形成術を施行されている。現在，性交渉は可能であるが，自己導尿を膈部から行っている。自然妊娠し，妊娠7週1日に当院を受診した。妊娠28週3日に右腎盂腎炎を発症し，治療を行った。その後右水腎症，尿管が残存したままであったため，妊娠29週4日に腎瘻を造設した。腔・会陰部は形成術後であり，伸展不良のため経膈分娩は不可能と判断し帝王切開での分娩を計画した。さらに下腹部には尿管，代用膀胱があるため，術前にMRI検査で腹腔・骨盤内の臓器の位置関係を確認し，上腹部正中切開による子宮底部横切開での見出しを計画した。妊娠38週0日に全身麻酔下で帝王切開を施行し，子宮底部横切開によって3,522gの男児を出産した。開腹時，子宮前壁下部は代用膀胱と広範囲に癒着を認めた。術後12日目に腎瘻を除去し，術後経過は良好であった。先天性疾患に対する手術後，特に泌尿生殖器の疾患に対する手術後の症例は解剖が通常と異なることが多く，個々の症例にあった分娩方法，帝王切開方法の検討が必要である。本症例では子宮底部横切開法にて娩出したが，子宮底部横切開法の適応や次回妊娠の許可基準，管理方法などは確立されておらず，今後さらなる症例の蓄積と検討が必要である。

Bladder exstrophy is a rare congenital anomaly characterized by a spectrum of anomalies affecting the ventral body wall, urinary tract, genitalia, bony pelvis, spine, and other structures. This report presents a case of pregnancy after reconstructive surgery for bladder exstrophy. The patient is a 30-year-old woman, gravida 3, para 0, who had undergone pelvic osteotomy, cystectomy, urinary diversion (catheterizable urine pouch), and vaginoplasty for bladder exstrophy. She conceived naturally and underwent a cesarean section by transverse uterine fundal incision under general anesthesia at 38 weeks of gestation due to the complicated pelvic anatomy. A 3,522 g healthy male baby was delivered. Intraoperative findings revealed extensive adhesions between the lower anterior uterine wall and the substituted bladder, and a vascular pedicle supplying the substituted bladder was present. This case highlights the importance of carefully considering the mode of delivery and incision site for cesarean section in women who have undergone complex urothelial reconstruction, given their complex pelvic anatomy and the presence of multiple pelvic adhesions.

キーワード：膀胱外反症，子宮底部横切開，先天性疾患外科治療後，尿路感染

Key words: bladder exstrophy, transverse uterine fundal incision, after surgery for congenital disorders, urinary tract infection

緒 言

膀胱外反症は先天性に下腹壁・膀胱前壁が欠損し，膀

胱内面が翻転・露出したものであり，新生児期から成人期にかけて継続的な外科治療が必要な疾患である¹⁾。周産期医療・小児医療の進歩と共に，従来は長期生存が困

難であった先天性疾患を持った児の生命予後および生殖機能予後は改善している。それに伴い、これらの児が生殖世代となることが可能となったため、女性であれば妊娠・出産をすることも可能となってきた²⁾。今回、小児期に膀胱外反症に対して修復術を施行した既往のある妊婦の一例を経験し、代用膀胱を用いた尿路形成術後という解剖学的特徴から、分娩様式について慎重な検討を必要としたため報告する。

症 例

症例：30歳

妊娠分娩歴：3妊0産（人工妊娠中絶2回）

既往歴：膀胱外反症，膀胱尿管逆流症，心室中隔欠損症，右水腎症，膀胱内結石

家族歴：父：高血圧，母：糖尿病

内服薬：なし

手術歴：

9ヶ月：両側腸骨骨切り術，膀胱尿道形成術

18歳：膀胱摘出，代用膀胱を用いた尿路形成術，膣口形成術

19歳：会陰形成術

25歳：代用膀胱内結石摘出，尿管閉塞解除術

29歳：両側尿管代用膀胱再吻合術

現病歴：

膣・会陰形成術後であり，性交渉は可能であるが，代用膀胱を用いた尿路形成術後のため，排尿は自己導尿を臍部から行っている。自然妊娠が成立し，妊娠7週1日に当院を受診した。先天性疾患術後であったため，妊娠22週0日から入院管理とした。

入院時所見：

身長160.0cm，体重51.5kg（非妊時：48.4kg），体温

36.2℃，血圧111/59mmHg，脈拍77回/分，整。

内診所見：

膣口はかなり前方へ偏位し恥丘付近に開口していた。恥骨は離開しているが，恥丘付近に硬結組織を認めた。

子宮口は右奥に存在し，閉鎖していた。

経膣超音波検査：子宮頸管長は34mmであった。

入院後経過：

入院時の腹部超音波検査にて右水腎症grade2（Ellenbogen分類）を認めたが症状はなく，経過観察としていた。妊娠28週3日に発熱を認め，右腎盂腎炎と診断し抗菌薬による治療を開始した。その後すぐに解熱し感染は治まったが，右水腎症・水尿管は残存した。増大した子宮による尿管や代用膀胱の圧迫による水腎症・水尿管と判断し，尿路感染再発を予防するため，妊娠29週4日に腎瘻造設術を行った。妊娠31週3日に頻回な子宮収縮を認めたため，塩酸リトドリンによる子宮収縮抑制を開始した。膣口・会陰部は形成術後であったため伸展不良であり，経膣分娩は不可能と判断した。代用膀胱と子宮の位置関係を把握するため，妊娠36週0日にMRI検査を行った（図1）。MRI検査で代用膀胱は子宮下部前面に位置し，臍の高さまで存在。腹壁と子宮との間で薄く伸びた状態となっていた。腹壁や子宮に癒着していることが予想され，通常の皮膚切開である下腹部縦切開では代用膀胱を損傷する可能性が高く，子宮筋層下部横切開での児の娩出は困難と判断し，代用膀胱の損傷を避けるため上腹部正中切開による子宮底部横切開法での帝王切開による分娩を計画した。新生児科医，小児外科医と相談し，緊急帝王切開は手術時の代用膀胱損傷のリスクが高いと判断し，保険適応外使用となることを患者へ説明，了承を得た上で，塩酸リトドリンによる子宮収縮抑制は，手術日まで継続した。妊娠38週0日に選択的帝王

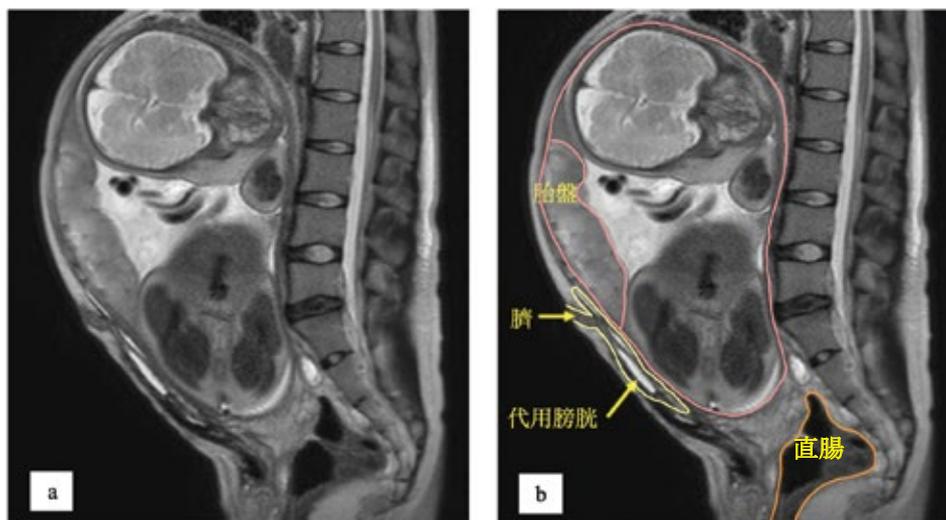


図1 腹部骨盤MRI検査（妊娠36週0日）

a. 実際のMRI画像。b. シェーマ：児は骨盤位。子宮前壁に胎盤が付着し，臍より下の腹壁と子宮との間に進展した代用膀胱が存在する。

切開術を施行した。

術中所見：

上腹部正中切開であること、今までの手術歴から強度の癒着の可能性があるため長時間の手術になる恐れがあることから全身麻酔下に手術を施行した。開腹すると、臍より下の子宮下部前壁と膀胱に広範囲の癒着を認め、代用膀胱を栄養する血管が露出していた。子宮底部横切開法にて児を娩出した。児は3,522g, 男児, 臍帯動脈血pH7.289, sleeping babyで出生した。マスク換気で蘇生され, Apgarスコア1分値6点, 5分値8点であった。子宮筋切開部を単結紮で2層縫合し, 漿膜を連続縫合した。手術時間は1時間28分で出血量は760gであった。皮

膚縫合後, 臍部より膀胱バルンを留置し手術終了した。

術後経過：

手術当日より母子同室を施行した。術後3日目に自己導尿を再開し, 術後12日目に腎瘻を抜去, 術後16日目に母児ともに経過良好にて退院した。術後3年で挙児希望があり, 子宮底部横切開術後であったため帝王切開創部の確認をするためにMRI検査を行った。子宮切開創部に癒着を認め(図2), 代用膀胱は子宮前壁の全面を覆うように癒着を認めた(図3)。MRI検査の結果より, 次回妊娠時の子宮破裂のリスクがあることや, 子宮破裂時に緊急帝王切開となった場合, 腹腔内の癒着によって児娩出までに時間を要する可能性や手術時に代用膀胱を損傷する可能性等について説明した。

考 案

近年, 先天性疾患に対して修復術を施行した既往のある妊婦が増加している。その背景として, 1980年代の小児外科医療の発展が, 先天性疾患をもつ児の生命予後および生殖機能予後を改善していることがある²⁾。この時の生存児が生殖年齢に達するようになり, 妊娠・出産も可能となっているが, 妊娠経過や分娩様式について詳細に記した報告は極めて少ない。

膀胱外反症は, 先天的に下腹壁・膀胱前壁が欠損し, 膀胱内面が翻転・露出したものである。総排泄腔と腹壁の発生異常が原因で尿道口が露出し, 同時に恥骨結合の解離や尿道上裂を伴う典型例から, 膀胱上部の粘膜だけが外反露出するもの, あるいは尿道上裂のみのものまで種々のパリエントが存在し, 本症の発生異常がさらに高度になったものが総排泄腔外反症である¹⁾。

総排泄腔外反症は「先天性難治性稀少泌尿生殖器疾患

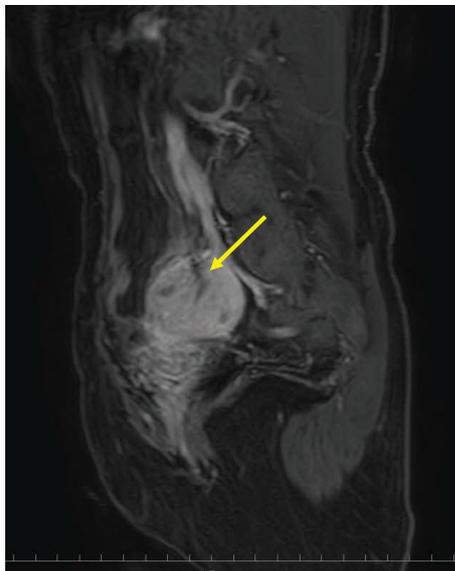


図2 帝王切開後のMRI検査
脊椎より右側の矢状断面像：右傾した子宮の底部横切開創部に造影効果の乏しい癒着を認める。

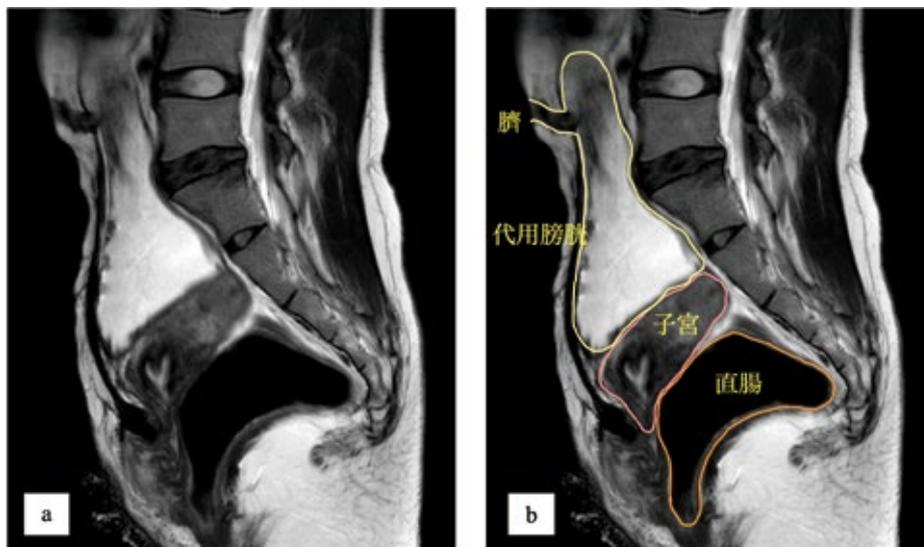


図3 帝王切開後のMRI検査
a. 実際のMRI画像。b. シェーマ：子宮前壁に癒着した代用膀胱が確認できる。

群（総排泄腔遺残，総排泄腔外反，MRKH症候群）におけるスムーズな成人期医療移行のための分類・診断・治療ガイドライン」³⁾が出版され，CQ6女性は妊娠・出産が可能か？の間に「周産期に消化管や尿路の合併症が生じうるので，より慎重な妊娠・分娩管理を要することも考慮すると，安易な妊娠・出産は勧められない」と記載されている。膀胱外反症も総排泄腔外反症と同様に膀胱や尿路の再建手術を必要とするため，尿路の合併症を生じやすく，同様に慎重な妊娠・分娩管理を要すると考えられる。今回我々は膀胱外反症の修復術既往のある妊婦の周産期管理を経験した。

本症例では膀胱を摘出し，回盲部を用いた代用膀胱と虫垂を用いた臍への導尿路作成が行われていた。妊娠経過中に尿路閉塞による水腎症から腎盂腎炎を発症したが，抗菌薬治療で軽快し，その後腎臓造設を行うことで感染症を再発することなく経過することができた。一般に腸管を利用した代用膀胱術後の細菌尿の頻度は高く，妊娠中の細菌尿，腎盂腎炎の頻度は60%に及ぶとされる^{4,5)}。またDeans et al.は膀胱外反症の修復術後の19人の妊婦のうち12人（63%）で尿路閉塞に伴う難治性の尿路感染を発症したと報告している⁶⁾。これは正常妊娠における細菌尿の頻度，あるいは腎盂腎炎の頻度と比較し有意に高い。妊婦の腎盂腎炎や尿路感染は早産のリスクを増加させ^{7,8)}，また敗血症や急性呼吸窮迫症候群，貧血，急性腎障害，腎膿瘍，母体死亡，子宮内胎児死亡，流産などの母体合併症を引き起こすことも報告されている⁹⁾。腸管を利用した膀胱を使用する例や尿路変更手術を施行している例では妊娠中の腎盂腎炎の併発を予防することが重要であると考えられる。

膀胱外反症の修復術後の妊婦の分娩様式については報告が少なく一定の見解は得られていない。Deans et al.は膀胱外反症の修復術後の19人における，57妊娠について全例帝王切開による分娩であったと報告している⁶⁾。また1例で緊急帝王切開を要したが，膀胱再建術後による癒着により児の娩出に時間がかかり児は死亡したため，複合的な尿路再建術を行っている症例では緊急の帝王切開は危険であるとしている。膀胱外反症では平均して8回の再建手術が施行されている⁶⁾とも記載され，本症例でも妊娠前までに5回の手術を施行されていた。一般的に手術回数が多くなることで，癒着のリスクは増加するため，膀胱外反症の修復術後の患者では，帝王切開に困難を伴う症例も多いと推測される。分娩方法の選択については慎重に検討し，緊急の帝王切開を極力避けることが必要であると思われる。

本症例では，膣口・会陰形成術後であり，診察にて会陰部の皮膚伸展にはかなりの制限が認められた。さらに，術前のMRI検査にて子宮前面に膀胱が位置しているため，通常の下腹部切開による帝王切開は不可能と判断

し，子宮底部横切開法による出産を選択した。しかし，子宮底部横切開後の子宮破裂や癒着胎盤などのリスクについては不明であり¹⁰⁾，さらに本症例のように尿路再建後で通常とは異なる解剖や複数回の手術に伴う癒着がある場合，次回妊娠時に緊急帝王切開となった場合の，児娩出までに時間を要したり，手術時に代用膀胱を損傷したりするリスクについて患者とよく話し合っただけで決定する必要がある。

このように先天性疾患に対する手術後，特に泌尿生殖器の疾患に対する手術後の症例は解剖が通常と異なることが多く，個々の症例にあった分娩方法，帝王切開方法の検討が必要である。また小児期に複数回の手術を行う治療を要する場合には腹腔内に高度の癒着を認めることが多く，帝王切開時の手術操作に難渋する症例は少なくない¹¹⁾。また，子宮底部横切開法の適応や次回妊娠の許可基準，管理方法などは確立されておらず，今後さらなる症例の蓄積や検討が必要である¹²⁾。

利益相反

演題発表内容に関連し，開示すべきCOI関係にある企業はありません。

文 献

- 1) 柿崎秀宏，野々村克也，小柳知彦．膀胱外反症．臨牀 1999；53：255-257.
- 2) 浮田真吾，林周作，川口晴菜，山本亮，村田将春，笹原淳，日高庸博，石井桂介，光田信明．新生児期に先天性疾患に対する小児外科手術を受けた女性の妊娠と分娩．日周産期・新生児会誌 2015；51：1046-1050.
- 3) 先天性難治性希少泌尿生殖器症候群（総排泄腔遺残，総排泄腔外反，MRKH症候群）におけるスムーズな成人期医療移行のための分類・診断・治療ガイドライン作成研究班：先天性難治性希少泌尿生殖器症候群（総排泄腔遺残，総排泄腔外反，MRKH症候群）におけるスムーズな成人期医療移行のための分類・診断・治療ガイドラインCQ6女性は妊娠・出産が可能か？第1.1版．東京：メジカルビュー社，2017；15-16.
- 4) Montie JE, MacGregor PS, Fazio VW, Lavery L. Continent ileal urinary reservoir (Kock pouch). Urol Clin North Am 1986; 13: 251-260.
- 5) Hill DE, Kramer SA. Management of pregnancy after augmentation cystoplasty. J Urol 1990; 144: 457-459.
- 6) Deans R, Banks F, Liao LM, Wood D, Woodhouse C, Creighton SM. Reproductive outcomes in women with classic bladder exstrophy: an observational

- cross-sectional study. *Am J Obstet Gynecol* 2012; 206: 496. e1-6.
- 7) Balachandran L, Jacob L, Awadhi RAI, Yahya LO, Catroon KM, Soundararajan LP, Wani S, Alabadla S, Hussein YA. Urinary tract infection in pregnancy and its effects on maternal and perinatal outcome. *Cureus* 2022; 14: e21500.
 - 8) De Lemos Zanatta DA, De Mello Rossini M, Trapani A Junior. Pyelonephritis in pregnancy: Clinical and laboratorial aspects and perinatal results. *Rev Bras Ginecol Obstet* 2017; 39: 653-658.
 - 9) Grette K, Cassity S, Holliday N, Rimawi BH. Acute pyelonephritis during pregnancy: a systematic review of the aetiology, timing, and reported adverse perinatal risks during pregnancy. *J Obstet Gynaecol Res* 2020; 40: 739-748.
 - 10) Koshimizu K, Kakogawa J, Murata S, Suzuki M, Suzuki T, Masaoka N. Uterine rupture in the third trimester of a pregnancy subsequent to a cesarean section by transverse uterine fundal incision: A case report and literature review. *Clin Case Rep* 2022; 10: e06752.
 - 11) 詠田真由, 甲斐翔太郎, 中野嵩大, 城戸咲, 蜂須賀正紘, 日高庸博, 藤田恭之, 江頭活子, 加藤聖子. 総排泄腔遺残術後患者における分娩の1例. *福岡産婦会誌* 2019; 42: 23-27.
 - 12) 米田稔秀, 三輪照未, 鷹巢剛, 大谷恵子, 浅田裕美, 三輪一知郎, 讚井裕美, 佐世正勝, 中村康彦. 子宮底部横切開法による帝王切開を試行した3症例. *現代産婦人科* 2021; 70: 1-5.

【連絡先】

福武功志朗
独立行政法人国立病院機構岡山医療センター産婦人科
〒701-1192 岡山県岡山市北区田益 1711-1
電話：086-294-9911 FAX：086-294-9255
E-mail：f10k24.rin@gmail.com