

症 例 報 告

尿閉，下腹部腫瘍で発症した処女膜閉鎖症の2例

埜口亮輔，中園貴彦，今井詩乃，濱崎雄平¹⁾，岩坂 剛²⁾，工藤 祥
佐賀大学医学部 放射線科，同 小児科¹⁾，同 産婦人科²⁾

Two Cases of Imperforate Hymen Presenting as Ischuria and Lower Abdominal Mass

Ryosuke Noguchi, Takahiko Nakazono, Shino Imai, Yuhei Hamasaki¹⁾,
Tuyoshi Iwasaka²⁾, Sho Kudo

Department of Radiology, Pediatrics¹⁾, and Gynecology²⁾, Saga Medical School

Abstract We report two cases of imperforate hymen with hematocolpos. Both patients were adolescent females. They complained of ischuria and lower abdominal mass. They presented at our hospital with the diagnosis of ovarian tumor. We performed ultrasonography (US) and MRI and diagnosed imperforate hymen in both cases. A hymenal incision was performed and the postoperative course was uneventful.

Imperforate hymen is a rare condition, its incidence reported to be 0.014 to 0.024%. It can be diagnosed by the patient's symptoms and physical examination, but it is sometimes found in the process of differential diagnosis for lower abdominal mass in a child or an amenorrheic adolescent female. US and MRI are useful for the diagnosis, clearly showing a dilated and obstructed vagina.

Keywords Imperforated hymen, MRI, US

はじめに

処女膜閉鎖症はまれな疾患で，典型的には思春期以降に発症し月経ごとに周期的な下腹部痛いわゆる月経モリミナを呈する。ただし，下腹部痛以外にも下腹部腫瘍，尿閉，頻尿，排便障害などさまざまな症状を呈しうる。また，多くの症例が思春期以降に発症し，会陰部の視診がためらわれがちになり診断まで時間がかかることも多い。

今回我々は卵巣腫瘍が疑われて紹介され，超音波検査，MRI検査が診断に有用であった処女膜閉鎖症の2例を経験したので報告する。

症 例

症例1：10歳女児

主訴：尿閉および下腹部腫瘍

既往歴，家族歴：特記すべきことなし

月経歴：初経なし

現病歴：排尿困難を主訴に近医小児科を受診し導尿が行われた。同時に行われた腹部超音波検査にて下腹部腫瘍を認め，卵巣腫瘍が疑われ当院紹介となった。

入院時現症：下腹部正中に8 cm大の弾性硬な腫瘍を触知，腹痛・圧痛なし。

原稿受付日：2005年12月1日，最終受付日：2006年1月20日

別刷請求先：〒849-8501 佐賀市鍋島5-1-1 佐賀大学医学部放射線科 埜口亮輔

MRI (Fig.1a, b)：腔腔の著明な拡張を認め、T1WI, T2WIともに高信号を呈する内容液で満たされている。内容液は信号パターンから赤血球外メトヘモグロビンの状態と考えられ亜急性期～慢性期の血性内容液と考えられた (Fig.1*)。拡張は外陰部レベルまでみられ処女膜閉鎖症およびそれに伴う腔留血腫の状態が強く疑われた。子宮腔に明らかな拡張は見られなかった。これとは別に子宮腹側に5 cm大の嚢胞性腫瘤を認めた。この腫瘤の頭側部分はT1WIにて高信号を示し同領域は脂肪抑制T1WI画像 (図なし)にて信号が抑制され脂肪成分と考えられた。境界明瞭な脂肪を含有する嚢胞性腫瘤で明らかな充実成分を認めず成熟嚢胞性奇形腫と診断した。

入院後経過：MRI所見より処女膜閉鎖症が強く疑われたため外陰部の視診が行われた。処女膜は膨隆し腔口は閉鎖した状態で暗赤調の内容液が透見でき、処女膜閉鎖症と診断された。本症例は卵巣腫瘍の合併が見られたが、尿閉の原因は解剖

学的位置関係から腔留血腫による尿道の圧排が原因と考えられた。その後、婦人科にて処女膜切開術 (十字切開) が施行され約400mlのチョコレート様の内容液が吸引された。卵巣腫瘍に関しては腫瘍摘出術が行われ成熟嚢胞性奇形腫の診断であった。術後の再狭窄は見られなかった。

症例2：12歳女児

主訴：尿閉および下腹部腫瘍

既往歴、家族歴：特記すべきことなし

月経歴：初経なし

現病歴：排尿障害を主訴に近医を受診し導尿が行われた。同時に行われた腹部超音波検査にて下腹部腫瘍を認め、卵巣腫瘍疑いにて当院紹介となった。

入院時現症：下腹部正中に10 cm大の弾性硬な腫瘍を触知。腹痛・圧痛なし。

入院時検査所見：超音波検査 (Fig.2a) では膀胱背側に8×10 cm大の内部エコーを有する嚢胞



Fig.1a, b T1 weighted sagittal image(a) / T2 weighted sagittal image(b)

The cystic mass between the urinary bladder and rectum is consistent with an enlarged vagina, which shows high intensity on T1WI and T2WI (hematocolpos(*)). The uterus is not enlarged (→). Arrow shows an ovarian tumor consistent with a dermoid cyst.

性腫瘍を認めた。子宮は強く頭側へ圧排され腫瘍と子宮頸部に連続性が認められた。子宮腔に明らかな拡張は見られなかった。以上より腔留血腫の状態が強く疑われた。

MRI (Fig.2b~d) では著明に拡張した腔腔を認め子宮を強く頭側へ、膀胱を腹側へ圧排していた

(膀胱内には尿道カテーテルが留置されている)。内容液はT1WIで高信号、脂肪抑制T1WI画像にて抑制されず、T2WIでは高～低信号の液面形成が認められた。すなわち、内容液はメトヘモグロビンの状態でT2WIでみられた背側の低信号を呈する沈殿物は血清から分離した粘稠度の高い血餅成分が沈着した状態が疑われ、亜急性期～慢性期の血性内容液と考えられた。拡張は外陰部レベルまで認められ処女膜閉鎖症および腔留血腫の状態が考えられた。

入院後経過：超音波、MRI 検査にて処女膜閉鎖症が強く疑われたため外陰部の診察が行われた。腔口閉鎖および処女膜の膨隆が確認され暗褐色調の内容液が透見でき、処女膜閉鎖症と診断された。婦人科にて処女膜切開術(十字切開)が施行され約300mlのチョコレート様の内容液が吸引された。術後の再狭窄は見られなかった。

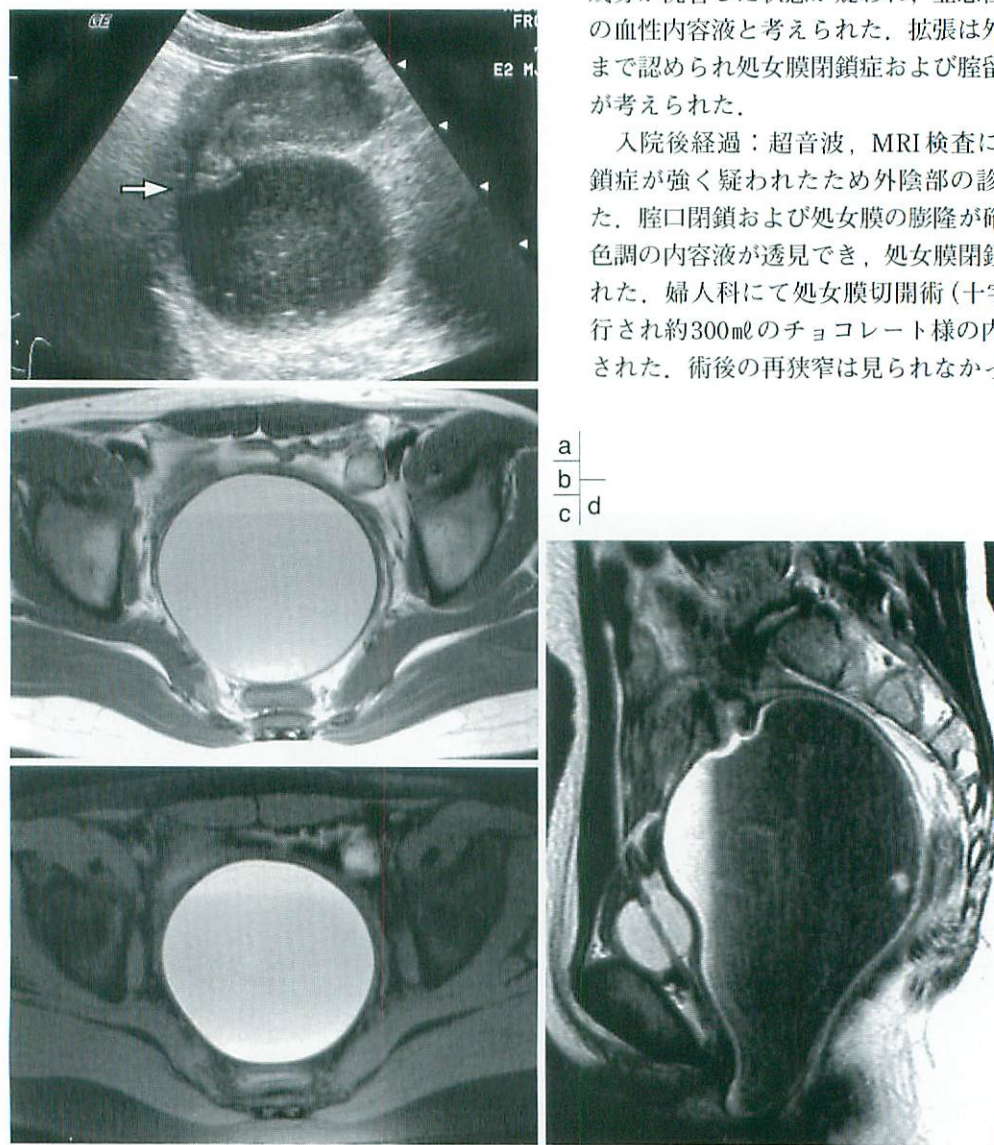


Fig.2a Ultrasonography of the pelvic cavity(longitudinal plane)

A large cystic mass is seen between the urinary bladder and rectum. It contains echogenic material and contacts with the uterine cervix(arrow).

Fig.2b~d T1 weighted axial image(b) / fat suppression T1 weighted axial image(c) / T2 weighted sagittal image(d)

A markedly distended vagina filled with material consistent with old blood is seen. The uterus is not enlarged. The occlusion is at the distal end of the vagina.

考 察

処女膜閉鎖症は鎖陰の一種とされ、その発生頻度は0.014～0.024%と比較的まれな疾患である¹⁾。大多数は先天性であり、胎生期の尿生殖洞やMuller管の発生異常による処女膜の融解障害や処女膜の発育過剰が原因と考えられている¹⁾。まれに、後天性として外傷後や炎症後の癒着もその原因になりうるとされている。

本症の多くは初潮発来前は無症状である。月経開始後に処女膜閉鎖のため月経血が腔内に貯留し腔留血腫を形成し、さらに進行すると子宮留血腫、卵管留血腫が形成され、その結果として、月経時期に一致した周期的下腹部痛みいわゆる月経モリミナといわれる特徴的症状を呈する。さらに、血腫増大に伴い膀胱・尿道、直腸が圧排され頻尿・便秘・腰痛が出現し、本症例のように尿閉で発症することもありうる²⁻⁶⁾。場合によっては血腫が腫瘍として触知され、卵巣腫瘍と間違われることもある⁷⁾。また、まれに新生児期においても発見される場合があるが、思春期発症例とは発生機序が異なり母体からのエストロゲンによる児の子宮頸管粘液の過剰分泌が原因となり腔留水腫を形成するとされ、新生児期の骨盤内腫瘍の鑑別の一つとして重要である⁸⁾。

本症の診断は婦人科によれば必ずしも困難ではなく、外陰部の視診により処女膜の膨隆を認めそれを通して暗赤調の内容液を見ることで診断可能である。ただし、年齢的に小児科や症状によっては泌尿器科を受診する場合が多く、卵巣囊腫やその捻転、急性虫垂炎と誤診された報告もある^{7, 9, 10)}。また、多くが思春期女児であることから外陰部の視診が省略され診断が遅れてしまうこともある。

画像診断としては超音波検査、MRI検査の有利用性の報告が多く、X線被ばくがなく簡便に行われる点からは超音波検査が第一選択と考えられる。超音波では下腹部正中で膀胱の背側に単房性囊胞性腫瘍が認められ、腫瘍の頭側で子宮頸部との連続が認められれば腔留血腫の状態と診断可能である。内部エコーは出血を反映して点状エコーを呈し流動性を認め、ときに血球成分と血漿成分が分離すれば鏡面形成により二相性を呈す

る¹¹⁻¹³⁾。ただし、本症例のように骨盤内腫瘍を認めたため卵巣腫瘍が疑われる症例も多く、本疾患を念頭におき周囲臓器との関連など注意深い観察が必要と思われる。MRIでは任意の方向から観察可能で腔留血腫、子宮留血腫の状態を明瞭に描出可能で術前評価としての解剖学的異常を容易に把握でき、また、貯留した液体の性状も評価可能で診断的価値が高い¹⁴⁾。内容液は亜急性期、慢性期血腫を反映してT1WIで高信号、T2WIで高信号、もしくはT1WIで高信号、T2WIにてshadingと呼ばれる低信号域を認める。T1WI、T2WIで高信号を呈する要因はメトヘモグロビン(赤血球外)によるとされ、T2WIで低信号の液面形成を認める場合は血清と分離した粘稠度の高い血餅成分や古い血腫内のヘモジデリンの常磁性体効果などが低信号の原因と考えられている^{15, 16)}。本症例も同様にT1WIではともに高信号であったが、T2WIでは高信号を呈する内容液(症例1)と高信号～低信号の液面形成を呈する内容液(症例2)がみられた。また、腔腔の拡張が直接観察でき、他の腹部腫瘍との鑑別も容易と考えられる。CT検査も診断に有用と考えられるが、患者が思春期女児であることを考えると被ばくの問題もあり現時点では不必要な検査と思われる。腔(～子宮)留血腫を呈する他の疾患として鎖陰の一種とされている腔閉鎖(処女膜後閉鎖および横膈膜)が鑑別として挙げられるが、血腫を形成する原因が処女膜閉鎖症と同様の機序であり、画像上処女膜閉鎖症と鑑別困難な場合も多く視診や内診と併せて判断する必要があると思われる。

本疾患の治療に関しては、内性器は正常であることが多く、処女膜の十字切開あるいは輪状切開が一般的であり予後良好な疾患である。本2症例も泌尿・生殖器に明らかな合併奇形は認められなかった。ただし、術後に再狭窄を来すことがあり十分な経過観察が必要とされている。

結 語

尿閉、下腹部腫瘍にて発症し、US・MRIにて典型的な画像所見を呈した処女膜閉鎖症の2例を報告した。

本疾患の診断には腹部超音波検査、MRI検査は非常に有用な検査であり、他の骨盤内疾患との

鑑別は容易であった。CT検査は被ばくのリスクもあり、本疾患の場合は特に思春期女児の疾患であり十分考慮すべきと考えられた。

●文献

- 1) 川上博：女性性器の奇形，發育・位置異常，損傷，炎症，現代産婦人科学体系8A，小林隆編，東京，中山書店，1971，p12-14.
- 2) 田村瑞穂，津久井厚：急性尿閉を呈した処女膜閉鎖症の1例，臨牀 1972；26：325-327.
- 3) 坂本修，菊田芳克，湧坂俊明，他：腔留血腫のため尿閉をきたした処女膜閉鎖症の1例，小児科診療 1993；56：1996-1998.
- 4) 滝花義男，村田明弘，小室三津夫，他：頻尿を主訴とした処女膜閉鎖症の1例，泌尿器外科 1996；9：887-889.
- 5) 島純子，永尾尚子：腰痛を主訴とした処女膜閉鎖症の1例，小児科 1991；32：837-839.
- 6) Warner RE, Mann RM : Hematocolpos with imperforate hymen ; report of five cases. Obstet Gynecol 1955 ; 6 : 405-409.
- 7) 渡辺秀樹，生山博，榎本英夫，他：卵巣嚢腫と誤認された処女膜閉鎖症の1例，日本産婦人科学会埼玉地方会部会誌 1992；22：253-256.
- 8) Mahoney PJ, Chamberlain JW : Hydrometrocolpos in infancy : Congenital atresia of the vagina with abnormally abundant cervical secretion. J Pediatr 1940 ; 17 : 772-780.
- 9) 北村好章，森田諭，紫田正，他：穿孔性急性虫垂炎との鑑別が困難であった先天性処女膜閉鎖症の1例，日本消化器病学会誌 1987；84：2432.
- 10) 神鳥理子，古川秀嗣，高橋直樹，他：腹痛と腰痛を主訴とした処女膜閉鎖症の1例，小児科臨床 1995；48：2447-2450.
- 11) 三木之美，西條晴美，稲畑利彦，他：処女膜閉鎖症の診断に腹部超音波検査が有用であった1例，医学検査 1999；52：1067-1069.
- 12) 中村滋，尾崎美紀，岩崎光博，他：スクリーニング超音波検査にて術前診断し得た処女膜閉鎖症の1例，医学検査 1999；48：1130-1134.
- 13) 草刈万寿夫，秦利之，真鍋敦，他：超音波検査が診断に有用であった処女膜閉鎖症の1例，産科と婦人科 1990；57：1795-1798.
- 14) Vainright JR, Fulp CJ, Schiebler ML : MR imaging of vaginal agenesis with hematocolpos. J Comput Assist Tomogr 1988 ; 12 : 891-893.
- 15) Osborn AG : Intracranial hemorrhage. Diagnostic Neuroradiology, In Osborn AJ(ed). St Luis, Mosby, 1994, p154-158.
- 16) Togashi K, Nishimura K, Kimura I, et al : Endometrial cysts : diagnosis with MR imaging. Radiology 1991 ; 180 : 73-78.