
症例報告

尿閉を伴った幼児卵巣類皮嚢胞腫茎捻転の1手術例

奈良県立医科大学第1外科学教室

大山孝雄, 中野博重

天理市立病院外科

島野吉祐, 四宮洋一

A CASE OF TORSION OF OVARIAN DERMOID CYST WITH URINARY RETENTION IN AN INFANT

TAKAO OHYAMA and HIROSHIGE NAKANO

First Department of Surgery, Nara Medical University

YOSHIHIRO SHIMANO and YOICHI SHINOMIYA

Department of Surgery, Tenri Municipal Hospital

Received October 26, 1998

Abstract: The patient was a girl 2 years and seven months of age. Because of vomiting, she was examined by a pediatrician on November 25, 1993. Her condition seemed to improve a little, however on November 29, she suffered from fever and anuresis, and was hospitalized in a surgical department. Physical examination revealed a distended abdomen and tenderness in the abdomen, but no tumor. An ultrasound examination was performed on the abdomen and a CT scan was performed on the pelvis. From the results of these tests, the patient was diagnosed with torsion of tumor in the left ovary. Peritoneotomy was performed and the result of the surgery showed that the tumor originated from the right ovary, and was incarcerated in the pelvic cavity, exerting pressure on the base of the bladder. The tumor was 7×6×6 cm in size, and contained hair balls and 15 g of serum. Pathohistologically, fatty tissues, as well as developed crinis and bone tissues were found. From these findings, the tumor was diagnosed as ovarian dermoid cyst. It is extremely rare for ovarian dermoid cyst to occur in children, and in Japan, there have been few cases of ovarian dermoid cyst in children under 7 years of age. Nonetheless, because of their age, one must be careful when handling these cysts.

(*奈医誌. J. Nara Med. Ass.* 50, 42~45, 1998)

Key words: dermoid cyst, torsion, urinary retention

- 教室参加者の社会関係に焦点を当てて. 日本公衛誌. 40: 363-373, 1993.
- 11) 山下公平・荒記俊一・村田勝敬・田宮菜奈子・佐々木和人: 脳卒中患者のADLの改善とQOLに及ぼす要因の解析 市町村の機能訓練事業の利用者を対象として. 日本公衛誌. 43: 427-433, 1996.
 - 12) 奈良市: 奈良市地域機能訓練実施要領. 1994.
 - 13) Lawton, M. P.: The Philadelphia Geriatric Center Morale Scale: a revision. J. of Gerontology 30: 85-89, 1975.
 - 14) 前田大作・浅野 仁・谷口和江: 老人の主観的幸福感の研究 モラルスケールによる測定の試み. 社会老年学 11: 15-31, 1979.
 - 15) 小町喜男・荒記俊一編: 機能訓練事業ガイドライン 効果的運用のために. 厚生科学研究所, 東京, pp.118-119, 1993.
 - 16) 厚生省: 「障害老人の日常生活自立度(寝たきり度)判定基準」作成検討会報告書. 同検討会, 東京, 1991.
 - 17) Cronbach, L. J.: Coefficient alpha and the internal structure of tests. Psychometrica 16: 297-334, 1951.
 - 18) Shapiro, S.: Randomized Controlled Trials in Health Services Research (Armenian, H. K. and Shapiro, S. eds.: Epidemiology and Health Services.) Oxford University Press, New York, pp. 157-181, 1998.
 - 19) Rossi, P. H. and Howard, E. F.: Evaluation. A Systematic Approach. 5th ed., Sage Publications, Newbury Park, California, pp.297-330, 1997.
 - 20) Vedung, E.: Public policy and program evaluation. Transaction Publishers, New Brunswick, New Jersey, pp. 165-208, 1997.
 - 21) Kunz, R. and Oxman, A. D.: The unpredictability paradox: review of empirical comparisons of randomised and non-randomised clinical trials. BMJ. 317: 1185-1190, 1998.
 - 22) David, L. Streiner and Geoffrey R. Norman: Health Measurement Scales: a practical guide to their development and use, 2nd ed. Oxford University Press, pp.163-180, Oxford, 1995.
 - 23) 小沢 温, 山崎喜比古, 園田恭一, 青山三男, 杉浦芳子, 田辺章次: 脳卒中後遺症患者の生活変容と保健所における機能訓練事業の役割に関する研究. 日本公衛誌. 34: 673-679, 1987.
 - 24) 竹内孝仁: 通所ケア学. 医歯薬出版, 東京, 1996.
 - 25) 後藤美代他: 機能訓練が本人・家族にもたらしたものの 大阪市東住吉保健所における実施報告, 保健婦雑誌 53: 779-784, 1997.
 - 26) 前田大作, 野口裕二, 玉野和志, 中谷陽明, 坂田周一, Jersey Liang: 高齢者の主観的幸福感の構造と要因. 社会老年学 30: 3-16, 1989.
 - 27) Lemon, B. W., Bengtson, V. L. and Peterson, J. A.: An exploration of the activity theory of aging: Activity types and life satisfaction among in-movers to a retirement community. J. of Gerontology 27: 511-523, 1972.
 - 28) Katz, S. Ford, A. B., Moskowitz, R. W., Jackson, B. A. and Jaffe, M. W.: Studies of illness in the aged. JAMA. 185: 914-919, 1963.
 - 29) 今田 拓: 日常生活活動(動作)の概念・範囲・意義 (土屋弘吉, 今田 拓, 大川嗣雄: 日常生活活動(動作)—評価と訓練の実際—, 第3版. 医歯薬出版, 東京), pp.1-25, 1993.
 - 30) 杉澤秀博: 高齢者における社会的統合と生命予後との関係. 日本公衛誌. 41: 131-139, 1994.
 - 31) 杉澤秀博・中谷陽明・前田大作・柴田 博: 高齢者における社会的統合と日常生活動作能力予後との関係. 日本公衛誌. 41: 975-986, 1994.
 - 32) 林 博史・阿彦忠之・安村誠二: 山形県における脳卒中発症者の予後, ならびに生活全体の満足度とその関連要因. 日本公衛誌. 42: 19-30, 1995.
 - 33) Rose, G.: The Strategy of preventive medicine. Oxford University Press, New York, 1992.

はじめに

卵巣類皮嚢胞腫は、10歳以下の小児では極めて稀とされている。今回我々は2歳7カ月で発症し、経過中尿閉をきたした卵巣類皮嚢胞腫茎捻転の1手術例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：2歳7カ月，女児。

主訴：嘔吐，腹痛。

既往歴，家族歴：特記すべき事なし。

現病歴：1993年11月25日，嘔吐を主訴に当院小児科を受診。自家中毒の診断で保存的治療を受け，一旦軽快した。11月27日，腹痛及び38度台の発熱が出現し，11月29日同科に入院後，800mlの持続点滴を受けるが自尿を認めず，当科紹介となる。

入院時現症：腹部は全体に膨満し，下腹部に強い圧痛を認めたが，腫瘤は触知しなかった。

入院時検査成績(Table 1)：白血球数22300/mm³，CRP 8.2と上昇を認め，尿中ケトン体陽性であった。

入院時腹部超音波検査(Fig. 1)：中等度の両側水腎症と緊満した膀胱およびその左側後方に，膀胱底部を圧排するように二重構造を示す腫瘤像を認め，内部に高エコー域を有する部分を認めた。

尿閉を伴った左卵巣腫瘍と診断したが，導尿により約600mlの尿を得ると同時に腹痛は消失した為，一旦経過観察とした。この時点で左下腹部に鶏卵大，弾性硬の腫瘤を触知するようになった。翌日の腹部超音波検査では水腎症は改善しており，腫瘤の大きさは前日と同程度で

あった。

骨盤造影CT検査(Fig. 2)：入院2日後の骨盤造影CT検査で腫瘤は著明に増大し，膀胱は右方へ圧排，変形している。

この時点で再び腹痛を訴えたため，左卵巣腫瘍茎捻転の診断の下，開腹手術を施行した。

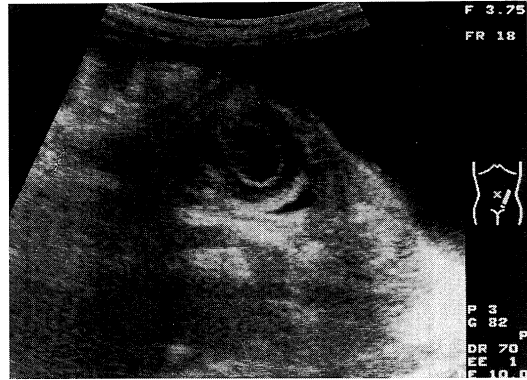


Fig. 1. Tumor is seen at the left back of the bladder and composed of double structure in abdominal ultrasonography on admission.

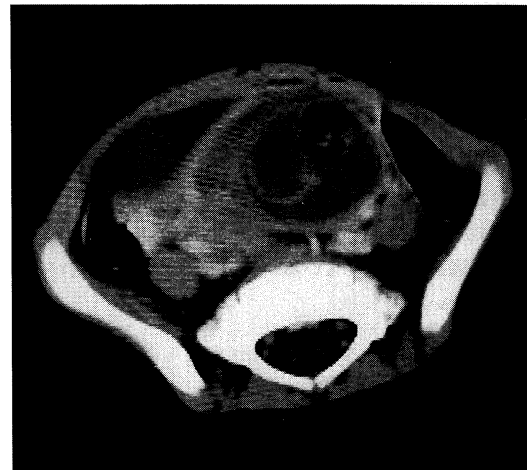


Fig. 2. Tumor enlarges and compresses the bladder in the contrast enhanced pelvic computed tomography on the third hospital day.

Table 1. Laboratory data on admission

末梢血液像		生化学的検査	
RBC	455 万/ μ l	T-Bil	0.7 mg/dl
Hb	11.7 g/dl	ALP	257 IU/
Ht	36.3 %	GOT	37 IU/l
plt	33.8 万/ μ l	GPT	9 IU/l
WBC	2.23 万/ μ l	LDH	1077 IU/l
血清学的検査		Amy	39 IU/l
CRP	8.2 mg/dl	T-P	6.5 g/dl
尿検査		BUN	14.1 mg/dl
ケトン体	(+)	Cre	0.3 mg/dl
蛋白	(-)	T-choI	210 mg/dl
潜血	(-)	UA	7.5 mg/dl
		Na	134 mEq/l
		K	5.8 mEq/l
		Cl	101 mEq/l

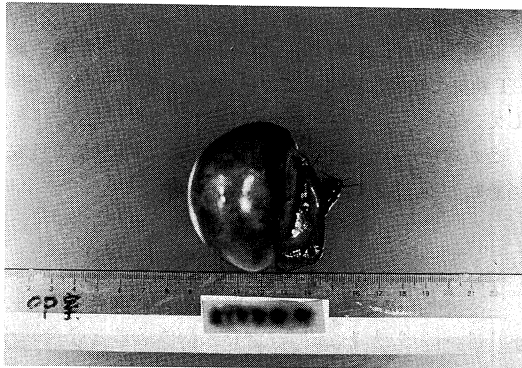


Fig. 3. Resected sample shows dark red color and the surface is smooth. It is contained hair balls, corny substance, coagula and 15 g of serum inside the tumor.

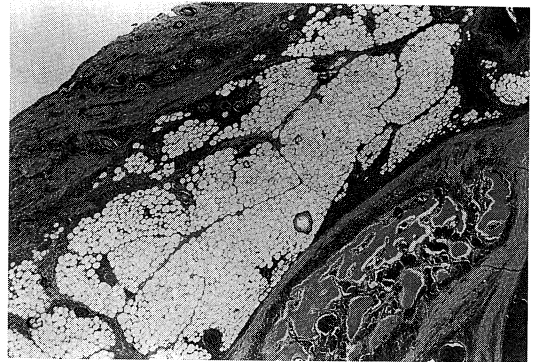


Fig. 4. Pathohistological finding shows the existence of fatty tissues, crinoid, and bone tissues into the tumor.

手術所見：下腹部正中切開で開腹。暗赤色手拳大の右卵巢腫瘍が、延長した右卵管を伴って左下腹部に移動し、後腹膜および膀胱に炎症性に癒着していた。時計回り、540度の捻転を解除した後、壊死に陥った右卵巢を摘出した。左卵巢および子宮は正常であった。

摘出標本(Fig. 3)：7×6×6 cm, 表面平滑な腫瘍で、滑面は二重構造を呈し、中心に毛髪を含んだ白色の角化物質、周囲に凝血塊および漿液 15 g が存在した。

病理組織学的所見(Fig. 4)：脂肪、毛髪、及び骨組織像を認め、類皮嚢胞腫と診断した。

術後経過は良好で術後 11 日目に退院した。類皮嚢胞腫の悪性化率は 0.2% と低いが、腫瘍マーカーが陽性を示す例も報告されており¹⁾、本症例でも術前、術後の血中および嚢胞内容液について調べたが、いずれも陰性であった。また、両側に同時発生する頻度が 10-15% あり²⁾、慎重に経過観察を続けている。術後 5 年を経た現在、その徴候はない。

考 察

卵巢類皮嚢胞腫は、胎性期の内、中、外胚葉組織から生じた混合腫瘍であり、性成熟婦人に好発し、小児期においては希である。その年齢分布は、0～4 歳 19%、5～9 歳 37%、10～14 歳 44% といわれており³⁾、低年齢ほど発生頻度は低い。一方、小児の卵巢腫瘍は茎捻転を起こしやすく、小児卵巢腫瘍の 60% に茎捻転が認められたとの報告もある⁴⁾。その理由として、子宮が小さいこと、

卵巢が解剖学的に高位にあること、卵管が比較的長いこと、身体運動が激しいことなどが挙げられる。本邦における学童期以前の卵巢嚢腫茎捻転の報告例を Table 2 に示した。発生は右にやや多く、捻転度は 360° 以上で、組織は全例、類皮嚢胞腫などの嚢胞性奇形腫であった。また、卵巢腫瘍茎捻転は急性腹症の形で発症することが多いとされているが、低年齢児においては例外も多く、腹部所見よりもむしろ経過中に遅れて出現する発熱や白血球増多などの炎症所見が前面にたち、術期を遅らせる例も少なくなかった。さらに、本症例において特徴的と思われる尿閉についてであるが、本邦において、卵巢腫瘍が原因で尿閉をきたしたと考えられる症例は、筆者らが検索しえたかぎりでは、本症例を含めて 7 例にすぎず、小児例では自験例が 3 例目となるが、茎捻転をきたして

Table 2. Summary of 8 torsion cases of ovarian dermoid cyst in children under 7 years of age reported in Japan

報告年	年齢	発生側	捻転度	主症状
本症例	2 歳 7 ヵ月	右	540°	尿閉、下腹部痛
1994	6 歳	右	540°	下腹部痛
1994	6 歳	左	540°	下腹部痛
1990	5 歳 9 ヵ月	左	360°	嘔吐、下腹部痛
1989	1 歳 7 ヵ月	左	360°	下腹部腫瘍
1972	2 歳 6 ヵ月	右	540°	軽度の腹痛
1970	4 歳 6 ヵ月	右	360°	軽度の腹痛
1966	6 歳 9 ヵ月	右	360°	無症状

いた症例は今回が初めての報告と思われる。手術は全例、片側卵巣摘出術が行われていた。可能な限り腫瘍核出術を試みるべきであることは言うまでもないが、西田ら⁹⁾は、卵巣腫瘍茎捻転の発症後36時間以上経過した例では腫瘍核出が可能なものはなかったと報告しており、また組織学的診断が可能なのは24時間以内であると述べている。先述したように、低年齢児では茎捻転の診断に苦慮する場合が多く、卵巣摘出術も、やむをえないと思われた。

類皮嚢胞腫の診断は比較的容易で、小児においては、とくに腹部超音波検査が有用である。近年の普及率の増加と、画像解析度の向上により、従来問題とされていた急性虫垂炎との鑑別は容易となり、嚢胞内の骨、歯牙による高輝度エコーや、毛髪による“hairball sign”が鮮明に描出されるようになったために⁹⁾、最近では術前に確定診断される症例が多く見られる。また、本症例では尿閉を伴っていたために膀胱が緊満し、腫瘍が膀胱を圧迫する像が明確に描出され、この経時変化を観察することで、腫瘍と尿閉の因果関係を類推する一助となった。

卵巣腫瘍による尿閉の機序として、腫瘍のダグラス窩への嵌頓による膀胱頸部および尿道の機械的圧迫⁷⁾や、腫瘍が膀胱底部を挙上させることによる引き上げ現象で尿道が延長、偏位すること⁹⁾などが考えられている。本症例においては、右卵巣が左膀胱底部後方に存在しており、また茎捻転により膀胱と強い炎症性癒着を呈し、左膀胱底部は前上方へ偏位していた。つまり、引き上げ現象による尿閉の可能性が高いと考えられた。さらに、右卵管は両側尿管をまたぐ形で存在しており、これが尿管開口部を圧迫していた可能性も否定できない。また、導尿管済みやかに腹痛が消失したことから、膀胱の緊満によって捻転が助長され、腫瘍が膀胱に与える影響が相対的に増大することにより尿閉の解除が遅れるという、一種の悪循環に陥った可能性があり、本症例において、乏尿の原因を脱水によるものとして安易に輸液を続けたことは

反省すべきである。以上のことから、小児尿閉の原因のひとつに腹腔内腫瘍があることを念頭におき、初期診断時に超音波検査を中心とした画像検査を積極的に行うべきであると思われた。

ま と め

幼児期に発症した卵巣類皮嚢胞腫茎捻転に尿閉を伴った稀な症例を経験し、小児期の尿閉に腫瘍性病変が原因となりうることを述べ、若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) 有岡秀樹, 小林良二, 内藤広行, 石川順一: CA 19-9, CA 125の異常高値を認めた小児卵巣成熟奇形腫の1例. 小児科診療. 56: 477-480, 1993.
- 2) Pepe, F.: Dermoid cysts of the ovary. Eur. J. Gynaec Oncol. 7: 186-192, 1986.
- 3) Groeber, W. R.: Ovarian tumors during infancy and childhood. Am. J. Obst. Gynec. 86: 1027-1035, 1963.
- 4) 上坊敏子, 中原優人, 島田信宏: 少女に多い卵巣腫瘍. 産科と婦人科. 55: 768-772, 1988.
- 5) 西田 敬, 杉山 徹, 荒木照宣, 久保紀夫, 三田村民夫, 井出 信, 西村治夫, 薬師寺道明: 卵巣腫瘍の茎捻転に関する臨床的および組織学的検討. 産婦人科の実際. 30: 1463-1468, 1981.
- 6) 半藤 保, 山崎俊彦: 類皮嚢胞腫の画像解析. 産と婦. 55: 805-807, 1988.
- 7) 田畑雅章, 松浦敏章, 橋本昌樹, 平田輝夫: 尿閉を主訴とした巨大卵巣嚢腫の1例. 臨泌. 36: 1077-1079, 1982.
- 8) 松本美代, 渡辺俊幸, 上門康成, 大川順正: 尿閉をきたした卵巣類皮嚢胞腫の女児例. 泌尿紀要. 39: 85-87, 1993.

**A CASE OF CAROLI'S DISEASE ASSOCIATED WITH CHOLANGITIS,
HEPATOLITHIASIS, AND POLYCYSTIC KIDNEY DISEASE :
USEFULNESS OF THE MAGNETIC RESONANCE
CHOLANGIOPANCREATOGRAPHY**

YOSHIHITO NAKAGAWA, SHUJI OGAWA, IKUO YABUTA, MOTOMU HAYASHI,
HIDEAKI YOSHIDA*, SHINICHI FUJIMOTO** and KAZUHIRO DOHI***

*Department of Internal Medicine and *Department of Surgery, Haibara Municipal Hospital*

***Department of Clinico-laboratory Diagnostics and ***First Department of Internal Medicine, Nara Medical University*

Received December 11, 1998

Abstract : Caroli's disease is a rare congenital condition characterized by cystic dilatation of the intrahepatic bile ducts. A 74-year-old man with chronic renal failure complicated by polycystic kidney disease presented with jaundice and fever. Ultrasonography, non-contrast computed tomography, and magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP) were performed. Contrast medium was not administered because of the renal failure due to polycystic kidney disease. MRCP provided cholangiographic images of the biliary system. No hepatic fibrosis was observed on liver biopsied specimens. Based on the cystic dilatation of the intrahepatic bile ducts, stone formation, cholangitis, absence of hepatic cirrhosis, and association with cystic of the kidneys, a diagnosis Caroli's disease was made. (奈医誌. J. Nara Med. Ass. 50, 46~49, 1999)

Key words : Caroli's disease, cholangitis, MRCP, polycystic kidney disease

INTRODUCTION

Caroli's disease is a rare congenital condition of the intrahepatic biliary tract which is characterized by multiple cystic dilatation of the bile ducts. It was clearly defined by Caroli et al.¹⁾ in 1958. Various complications has been reported including bile stasis, stone formation, and biliary tract infection. Since new diagnostic techniques for evaluation of hepatic disease have been introduced, the number of reported cases of Caroli's disease has increased²⁾. Recently, Pavone et al.³⁾ have demonstrated the utility of magnetic resonance cholangiopancreatography in the diagnosis of Caroli's disease. In this report, a patient with Caroli's disease complicated with cholangitis, hepatolithiasis, and polycystic kidney disease is described. The usefulness of new imaging modalities for the diagnosis of Caroli's disease is discussed.

CASE REPORT

A 74-year-old man was admitted to our hospital because of fever and pain in the right upper quadrant of the abdomen which continued for one week. He had chronic renal failure (since age 70), but no past history of biliary tract disease or hepatic dysfunction. There was no family history of hepatobiliary or polycystic kidney disease.

Physical examination revealed jaundice and dehydration. His temperature was 38.2°C, heart rate was 84 beats/min, and blood pressure was 140/85 mmHg. No lymph nodes were palpable.