

酸化再生セルロース膜を用いた造膣術後に妊娠出産した 先天性膣下部欠損症の一例

川並麟太郎, 山内敬子, 堀川翔太, 渡邊憲和, 松尾幸城, 永瀬 智

山形大学医学部産科婦人科学講座
(令和4年6月30日受理)

抄 録

先天性膣下部欠損症は造膣術が主な治療であるが、術後の再狭窄や性交障害例が多く、分娩まで至った報告は少数である。今回、酸化再生セルロース膜を用いた造膣術施行後に、妊娠・分娩まで至った先天性膣下部欠損症を経験したので報告する。17歳、未妊。14歳より周期的な下腹部痛を自覚し、月経がなく近医受診。診察上小陰唇が癒合し膣口を認めず、精査目的に当科紹介。MRI検査では膣下部2/3は索状の瘢痕で、右卵巣の腫大を認め、先天性膣下部欠損症による月経モリミナ、右卵巣チョコレート嚢胞と診断し、腹腔鏡下造膣術と内膜症病変焼灼術を施行し、術後LEP製剤を開始した。22歳時に性交障害を認め、受診した。膣口の再狭窄と卵巣チョコレート嚢胞再発の診断で、2回目の造膣術と腹腔鏡下内膜症病変焼灼術を施行した。術後は膣口の狭窄予防に、酸化再生セルロース膜を被覆した膣拡張器の自己挿入を指導した。その後性交は可能だったが妊娠せず、23歳時に不妊外来受診した。採血上、卵巣機能低下を認めた。人工授精で妊娠せず、顕微受精後に妊娠した。膣口狭窄のため、経膣分娩は困難と判断し帝王切開術とした。産後6か月でLEP製剤を開始し現在明らかな子宮内貯留は認めていない。今回、月経モリミナや子宮内膜症を有する先天性膣下部欠損症に対して造膣術を施行し、術後の膣再狭窄予防目的に酸化再生セルロース膜を被覆した膣拡張器を装着した結果、妊娠、分娩まで至った症例を経験した。将来的な妊娠や出産を見据えて、造膣後の狭窄、内膜症や手術に伴う妊孕性の低下をモニタリングする長期的な管理が重要と考えた。

キーワード：膣下部欠損症、膣形成術、妊娠

緒 言

先天性膣下部欠損症は機能性子宮を有するため、月経モリミナを頻発する。造膣術が主な治療であるが、術後の再狭窄や性交障害例が多く、分娩まで至った報告は少数である。今回、酸化再生セルロース膜を用いた造膣術施行後に不妊治療を行い、妊娠・分娩まで至った先天性膣下部欠損症を経験したので報告する。

症 例

17歳 未妊
主訴：無月経、月に1度の下腹部痛
既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：14歳時から月に1回の周期的な下腹部痛を認めていた。17歳時、月経の発来がないため近医産婦人科クリニックを受診した。外陰部の視診では膣口は認めず、経直腸超音波断層法にて、子宮内の液体貯留と両側卵巣の腫大を認めたため、精査加療目的に当科紹介初診となった。

現症：身長は164.5cm、体重は51.5kgで、乳房発育や恥毛を認め、陰核や大陰唇、小陰唇は正常だが、膣口や膣腔は認めなかった(図1)。

検査：経直腸超音波断層法上、子宮内腔に血液の貯留を認め、その厚さは10.8mmに拡張し、両側卵巣に嚢胞性腫瘍を認めた。Magnetic resonance imaging (MRI) では子宮体部と子宮頸部に形態的異常はなく、膣上部1/3は確認できたが、膣下部2/3は確認できな



図1 初診時の外性器
腔口は閉鎖している (矢頭: 尿道口)

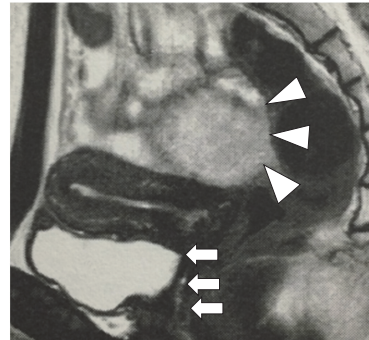


図2 術前骨盤MRI (T2強調像、矢状断面)
腔下部欠損と子宮頭側の内膜症性嚢胞を認めた
(矢頭: 内膜症性嚢胞、矢印: 腔欠損部)

かった。左卵巣は49mmに腫大し、卵巣チョコレート嚢胞が疑われた(図2)。

血液検査では、血算・生化学所見に異常はなかった。血清ホルモン検査値は、luteinizing hormone (LH) 2.2mIU/mL、follicle stimulating hormone (FSH) 6.5mIU/mL、prolactin (PRL) 3.5ng/mL、estradiol (E2) 39pg/mLで異常所見は認めなかった。以上より、腔下部欠損症による月経モリミナ、卵巣チョコレート嚢胞と診断した。月経困難症状の改善を目的に、腔式造腔術を行う方針とした。また、卵巣チョコレート嚢胞に対しては、腹腔鏡下に嚢胞内容液の吸引を同時に行うこととした。

初回手術時所見：全身麻酔下に腹腔鏡補助下造腔術を施行した。子宮は正常大だが、両側卵巣は腫大しており、腹膜に内膜症性病変を認めた(revised American Society of Reproductive Medicine: rASRM分類 44点、Stage IV)。腔口は認めなかったため、腔前庭に横切開を加え、膀胱直腸間の結合組織を指で鈍的剥離し腔管を腔鏡で拡張し、子宮腔部まで到達した。腹腔鏡下に腫大した卵巣嚢腫の内容液を吸引し、嚢胞壁を焼灼して手術を終了した。

術後経過：術後1日目より腔壁の癒着防止と感染予防を目的に、腔洗浄後に、ゲンタシンクリーム0.1%とディピゲル1g、キシロカインゼリー2%の混合クリームを、連日ネラトンチューブで腔内に注入した。16日目に経過良好のため退院した。術後22日目、腔の狭小化を認めたため、腔狭窄予防として週2回の外来受診時に、SSクスコ氏腔鏡で腔管の拡張を行った。また、経血量減少と子宮内膜症の再発予防目的に術後22日目よりlow dose estrogen progestin (LEP) 製剤の内服を開始した。月経時の下腹部痛はなく経過し、術後50日からフォロー間隔を1か月に延長した。術後3か月まではダイレーター挿入による拡張が可能だった。

が、術後4か月には小指が挿入できる程度まで狭窄し、術後1年目には腔口から2cm以上先は綿棒が通る程度まで狭窄した。

術後5年目(22歳)の時に性交困難のため当科紹介再受診となった。腔の再狭小化と判断し、性交を可能とすることを目的に、腔式造腔術を施行する方針とした。さらに、両側卵巣チョコレート嚢胞の再発を認め、腹腔鏡下に卵巣嚢腫の内容液吸引を同時に行う方針とした。この際、術前休薬にあわせてLEP内服を終了とした。

再手術時所見：全身麻酔下に腹腔鏡補助下造腔術を施行した。腔口は認めたが、腔長は3cmまで短縮し、その奥に狭小化した腔を認めたが、子宮腔部は確認できなかった。腹腔内は、両側卵巣が軽度腫大し周囲の腹膜に癒着していた。腹腔鏡補助下に経腔的に鈍的・鋭的に狭小化した腔を拡張し、子宮腔部を確認した。子宮にヒスキャス®を挿入し、両側卵管通過性良好であることを確認した。腔ダイレーターに酸化再生セルロース膜を被覆し、腔内に挿入した(図3)。腹腔鏡下に腫大した卵巣嚢腫の内容液を吸引し、嚢胞壁を焼灼して手術は終了した。

再手術後経過：手術時に挿入した腔ダイレーターは術後3日目の排便時に抜去し、その後は腔狭窄と癒着予防目的に、酸化再生セルロース膜で被覆した腔ダイレーターを2日毎に交換した。入院中に腔ダイレーターの自己挿入を指導し、術後7日目に退院した。退院後は就寝時にゲンタシンを塗布した腔ダイレーター挿入を継続した。週2回外来受診し、術後1か月目に腔粘膜の上皮化を確認した。29日目からLEP製剤の内服を再開し、37日目から性交を許可した。腔ダイレーターの自己挿入は継続した。

性交は可能だったが術後1年経過しても妊娠に至らず、挙児希望のため不妊外来を受診した。診察上、腔



図3 外陰部所見（第2回造陰術後）
陰内にダイレーターを挿入した

鏡診では、陰部を確認でき、人工授精用カテーテルの挿入は可能だった。経陰超音波断層像では、20mmの左卵巢チョコレート嚢胞を認めたが、子宮内に血液像の貯留は認めなかった。ホルモン検査では、LHは5.1mIU/ml、FSHは8.9mIU/ml、E2は36pg/mlだった。Anti-müllerian hormone (AMH) は0.93ng/mlと年齢と比較して低下していた。精液所見に異常はなかった。AMHの低下とFSHの上昇を認め、卵巢予備能の低下が疑われた。Endometriosis fertility index (EFI) は既往歴スコア4点、術中所見スコア3点（最低機能スコア両側卵巢2点ずつ、r-ASRM病巣スコア20点、合計スコア44点）の計7点であった。両側卵管の通過性良好は2回目の手術時に卵管通水で確認しており、卵巢予備能の低下とEFIスコアが7点であったことから6～12か月間の排卵誘発及び、人工授精を行う方針とした。人工授精を6周期施行したが妊娠には至らなかったため体外受精の方針とした。アンタゴニスト法で1個採卵したが受精せず、クロミッド法3コース目で1個採卵し、受精したが妊娠に至らなかった。自然周期で採卵後、顕微授精し、新鮮胚移植後に妊娠が成立した。妊婦健診中は特記すべき異常なく経過した。分娩様式に関しては、陰狭窄のため経陰分娩困難と判断し、選択的帝王切開術の方針とした。妊娠38週4日に選択的帝王切開術施行し、生児を得た。児は2,690gの女児でApgar Scoreは1分値8点、5分値9点で臍帯動脈血pHは7.315であった。術後は悪露・帯下の明らかな子宮内貯留は認めなかった。産後6か月目から、子宮内膜症の再発予防目的にLEP製剤を開始し、月経困難症状の出現なく現在まで経過している。

考 察

先天性陰欠損症は稀な疾患であり、その発生率は4000～5000人に1人といわれ、そのうち7～8%に機能性子宮を認める¹⁾。機能性子宮を持つ陰欠損症は、多くが思春期に原発性無月経と周期的な下腹部痛を認める月経モリミナを契機に発見される。女性性器は胎生期のMüller管および尿生殖洞の分化発達により形成されるが、本症例のような陰下部欠損症の場合、Müller管下部または尿生殖洞の形成異常が生じることで発生すると考えられている。

機能性子宮を持つ陰欠損症の場合、月経血の貯留による周期的な腹痛や月経血逆流による子宮内膜症の発症を伴うことがある。周期的な腹痛を伴う場合、早期の治療が必要となる。観血的な造陰術には、腸管や遊離皮膚弁、腹膜を利用した術式（McIndoe法、Davydov法、Ruge法）²⁾ が一般的に行われてきた。しかし、腸管切除や皮膚切除等は侵襲度が高い術式である。造陰術後の合併症として、陰炎や陰の再狭窄が問題となり、陰再狭窄によるモリミナを繰り返すことで、子宮全摘出術を選択せざるを得ない症例も報告されている³⁾。陰の狭窄予防には、術後の陰の拡張が重要となり、拡張方法としては、陰内タンポン⁴⁾、陰拡張器^{5)～8)}、細菌感染による癒着予防に抗生物質を浸透させたガーゼの陰内挿入やゲンタシンクリームの陰内注入¹¹⁾ が試みられている。近年では、高侵襲な手術が必要な遊離皮膚弁や腸管を造陰術に用いる代わりに、人工真皮であるアテロコラーゲン膜やゴアテックスを用いて粘膜欠損部を被覆する方法^{9),10)} が報告されており、より低侵襲で美容に優れた術式が行われるようになってきている。前陰粘膜に切開を加えた後に鈍的に陰を形成し、酸化再生セルロース膜¹¹⁾ で覆ったプロテーゼを陰内に挿入する方法も報告されている。この報告では、陰腔は1から4か月で扁平上皮に置換され、陰狭窄や感染症等の術後合併症はみられていない¹¹⁾。

本症例は、機能性子宮を持つ陰欠損症で、月経モリミナを認めたため、早期の拡張術が必要と考え、造陰術を施行した。初回手術が17歳であること、パートナーはいなかったことから、造陰術後のダイレーターの自己挿入を継続することは困難で、小林ら³⁾ と同様に初回の術後は混合クリームの陰内挿入を行い、週2回の受診時に、SSススコ氏陰鏡で拡張したが再狭窄を呈した。再手術後は、低侵襲な方法である酸化セルロース膜を被覆した陰ダイレーターを用いることで再狭窄をきたすことなく経過した。さらに、22歳でパー

トナーが存在していたこと、本人の妊娠や出産に対する意欲があり、術後の腔ダイレーター挿入を継続できたことにより、性交が可能な状態が持続したと考えられた。

機能性子宮を持つ腔欠損例に造腔術を施行する目的には、月経モリミナの改善の他に、性交を可能にしてQOLを向上させることがある¹⁾。機能性子宮を持つ先天性腔欠損症の場合、性交を持つことで、妊娠、分娩が可能となるが、腔欠損症のこれまでに報告された妊娠分娩例は多くない。これまで10例の腔欠損症の妊娠例の報告があったが、9例が自然妊娠例であり^{12)~17)}、他の1例は卵管膿瘍を伴う卵管性不妊のため体外受精後に妊娠が成立した¹⁸⁾。子宮頸部欠損を伴う腔欠損症の妊娠例は5例^{12)~14)}、単角子宮を伴った腔下部欠損症例の妊娠例が1例¹⁵⁾、腔上部または腔下部欠損症例の妊娠例が2例^{16), 18)}、重複子宮を伴った腔下部欠損症例の妊娠例が2例¹⁷⁾、2例を除いた8症例で造腔術を施行していた。造腔方法は報告毎に異なり、妊娠に至るための最善な造腔法は定まっておらず、今後の症例の蓄積が必要である。また、術後の狭窄予防には拡張器を用いたのが8例^{12)~16)}、2例^{17), 18)}は記載がなかった。大半の症例が狭窄予防を行っていたが、今回のように酸化再生セルロース膜を用いた妊娠例は初めての報告だった。分娩方法は、1例は自然分娩¹⁸⁾、2例は吸引分娩¹⁷⁾、5例は帝王切開術による分娩^{14)~16), 18)}、2例は分娩様式不明であった¹²⁾。新生腔の狭窄、瘢痕による分娩障害が予想されるため、帝王切開術による分娩の報告が最も多かった。

本症例はAMHの低下やFSHの上昇を認め、術中所見で卵管の通過性を確認できたことから卵管性不妊と考えられた。また、EFIスコアが7点の場合はEFIスコア別推定術後妊娠率は12か月後で41.0%という報告もあり、6-12か月間の排卵誘発および人工授精は妥当であると考えられる^{19), 20)}。卵管性不妊の原因としては、子宮内膜症病変に対する2回の卵巣皮質の蒸散が影響しているものと考えられた。腔欠損症は、高率に子宮内膜症を合併する⁸⁾ことから不妊症との関連が示唆され、機能性子宮を伴う腔欠損症に対しては、子宮内膜症予防を目的としたLEPやジェノゲスト等のホルモン療法が推奨されている^{8), 19)}。また、機能性子宮を伴う腔欠損症は、新生腔の維持やモリミナ再発の予防など造腔術を行ってから妊娠や分娩に至るまでの長期的な管理が必要となり、LEP製剤の投与は産婦人科への通院を継続させる目的としても有用である。

結 語

今回、月経モリミナや子宮内膜症を有する先天性腔下部欠損症に対して造腔術を施行し、術後の腔再狭窄予防目的に酸化再生セルロース膜を被覆した腔拡張器を装着した結果、妊娠、分娩まで至った症例を経験した。これまで施行されてきた観血的造腔術と比較して、酸化再生セルロース膜を被覆した腔拡張器の装着は、低侵襲で術後の感染リスクが低いという点においては、優れた術式と考えられた。さらに、将来的な妊娠や出産を見据えて、造腔後の狭窄、子宮内膜症や手術侵襲に伴う妊孕性の低下をモニタリングする長期的な管理が重要と考えた。

参考文献

1. Committee on Adolescent Health Care: ACOG Committee Opinion No. 728: Müllerian Agenesis: Diagnosis, Management, And Treatment. *Obstet Gynecol.* 2018; 131(1): 35-42
2. 日本産科婦人科内視鏡学会：第9章先天性腔欠損症。日本産科婦人科内視鏡学会編，産婦人科内視鏡手術ガイドライン2019年版。東京；金原出版，2019：109-112
3. 小林麻美，福田淳史，船水文乃，福山麻美，福原理恵，水沼英樹：子宮頸部低形成・腔欠損に対し腹腔鏡補助下子宮頸管開口術・腔形成術を施行した一例。青森県臨床産婦人科医会誌 2011；26(2)：88-94
4. 田中一範，北脇城，保田仁介，加藤淑子，本庄英雄，岡田弘二：機能性子宮を温存して造腔術を行った腔欠損症の1例。産婦の進歩 1990；42(4)：493-498
5. 萩本真理奈，栗田智子，柴原真美，遠山篤史，植田多恵子，鏡誠治，他：腹腔鏡補助下造腔術を施行した機能性子宮を有する子宮頸部低形成・腔欠損症の1例。日本産科婦人科内視鏡学会雑誌 2020；36(1)：178-184
6. 大石王，力丸由紀子，守永圭吾，清川兼輔：3cm以上の先天性腔閉鎖症に対し腔腔形成術の工夫を行った2例。形成外科 2018；61(8)：1028-1034
7. 藤井俊策，福井淳史，松倉大輔，阿部和弘，湯沢映，水沼英樹：腔欠損症に対する腹腔鏡補助下造腔術（Davydov変法）の検討。青森県臨床産婦人科医会誌 2002；17：12-16
8. 鎌田泰彦，檜野千明，久保光太郎，酒本あい，衛藤英理子，平松裕司 他：5年8か月にわたる保存的管理を行った機能性子宮を有する腔欠損の1例。現代産婦人科 2019；68(2)：133-138
9. 古谷健一，永田一郎，新井克志，菊池義公：Rokitansky-Küster-Hauser症候群における造腔術：各種

- 造陰術の比較と人工真皮を用いた新しい造陰術の試み.
産婦人科手術 2004 ; 15 : 27-35
10. 平松祐司, 三橋直樹, 長田尚夫, 落合和彦, 滝澤憲
福地剛, 他 : 人工真皮の種類と人工造陰術への応用. 産
婦人科手術 2004 ; 15 : 123-128
 11. 熊澤由紀代, 熊谷仁, 金森勝裕, 児玉英也, 寺田幸
弘 : 酸化再生セルロース膜を用いて造陰術を行った陰欠
損症の1例. 秋田医学 2014 ; 41 : 35-39
 12. Baidyanath Chakravarty, Hiralal Konar, Nagendra
N. Roy Chowdhury: Pregnancies after reconstructive
surgery for congenital cervicovaginal atresia. Am J
obstet Gynecol 2000; 183(3): 421-423
 13. P. Acién, M.I.Acién, F.Quereda,T.Santoyo:
Cervicovaginal agenesis spontaneous gestation at term
after previous reimplantation of the uterine corpus in a
neovagina. Hum Reprod 2008; 23(3): 548-553
 14. J.V.Deffarges, B.Haddad, R.Musset, B.J.Paniel:
Utero-vaginal anastomosis in women with uterine
cervix atresia: long-term follow-up and reproductive
performance. A study of 18 cases. Hum Reprod 2001;
16(8): 1722-1725
 15. M.D. Moura, P.A.A.S.Navarro, A.A.Nogueira:
Pregnancy and term delivery after neovaginoplasty in
a patient with vaginal agenesis. Int J Gynaecol Obstet
2000; 71(3): 215-6
 16. Yu Liu, Yi-Feng Wang: Successful vaginal delivery
at term after vaginal reconstruction with labium minus
flaps in a patient with vaginal atresia: A rare case
report. J Obstet Gynaecol Res 2017; 43(7): 1217-1221
 17. Albert Altchek, John Paciuc: Successful pregnancy
following surgery in the obstructed uterus in a uterus
didelphys with unilateral distal vaginal agenesis and
ipsilateral renal agenesis: Case report and literature
review. J Pediatr Adolesc Gynecol 2009; 22(5): 159-162
 18. Geeta Nargund, John Pasons: A successful in-vitro
fertilization and embryo transfer treatment in a woman
with previous vaginoplasty for congenital absence of
vagina. Hum Reprod 1996; 11(8): 1654
 19. 日本産科婦人科学会 : 日本産科婦人科学会編, 子宮
内膜症取扱い規約 第2部 診療編 第3版. 東京 ; 金
原出版, 2021 : 2-10
 20. Adamson GD, David J Pasta: Endometriosis fertility
index: the new, validated endometriosis staging system.
Fertil Steril 2010; 94(5): 1609-1615

Pregnancy and term delivery after vagino plasty using oxidized regenerated cellulose membrane in a patient with congenital lower vaginal defect

**Rintaro Kawanami, Keiko Yamanouchi, Syouta Horikawa,
Norikazu Watanabe, Koki Matsuo, Satoru Nagase**

Department of Obstetrics and Gynecology, Yamagata University Faculty of Medicine

ABSTRACT

We report an exceptional case of congenital lower vaginal defect after vaginoplasty using an oxidized regenerated cellulose membrane. A 17-year-old patient presented with amenorrhea and periodic lower abdominal pain owing to vaginal agenesis with a functional uterus and a right ovarian chocolate cyst. Vaginoplasty was performed at the same time as conservative surgery for endometriosis. Five years after surgery, she visited our department for dyspareunia owing to vaginal restenosis. Vaginoplasty was performed again using oxidized regenerated cellulose to cover the new vaginal wall. Postoperatively, a mold was placed in the new vagina, and the patient could have sexual intercourse. One year after surgery, she visited our department for infertility caused by ovarian failure. She became pregnant after an IVF treatment. A caesarean section was performed at 38 weeks. Six months postpartum, she was treated for LEP and currently has no apparent intrauterine retention.

Keywords: congenital lower vaginal defect, vaginoplasty, pregnancy