

東邦大学学術リポジトリ

Toho University Academic Repository

タイトル	診断に難渋した小児尿道カルンクルの一例
別タイトル	A Difficult to Diagnose Urethral Caruncle in a Young Girl: A Case Report
作成者（著者）	田中, 章太 / 藤巻, 有希 / 長谷川, 慶 / 森山, 梓 / 酒井, 正人 / 黒岩, 実 / 宍戸, 清一郎 / 小原, 明
公開者	東邦大学医学会
発行日	2019.06.01
ISSN	00408670
掲載情報	東邦医学会雑誌. 66(2). p.117 121.
資料種別	学術雑誌論文
内容記述	症例
著者版フラグ	publisher
JaLCDOI	info:doi/10.14994/tohoigaku.2018 021
メタデータのURL	https://mylibrary.toho u.ac.jp/webopac/TD29110053

診断に難渋した小児尿道カルンクルの一例

田中 章太^{1)*} 藤巻 有希¹⁾ 長谷川 慶¹⁾
 森山 梓²⁾ 酒井 正人³⁾ 黒岩 実³⁾
 宍戸清一郎⁴⁾ 小原 明¹⁾

¹⁾東邦大学医療センター大森病院小児科

²⁾東邦大学医療センター大森病院産婦人科

³⁾東邦大学医療センター大森病院小児外科

⁴⁾東邦大学医療センター大森病院腎センター

要約：尿道カルンクルは通常、閉経後の女性に発生する尿道の良性腫瘍である。症例は特記すべき既往のない7歳女児。外陰部からの出血、粘膜腫脹を認めた。腔悪性腫瘍を疑い、生検を施行。尿道バルーンを挿入した際の外表所見と病理所見から尿道カルンクルと診断。外用抗菌薬による経過観察を行い、約6ヶ月後に病変は消退した。小児の尿道カルンクルは、希少性や婦人科診察の困難さから、診断に難渋する症例は多いと考えられる。

東邦医学会誌 66(2)：117-121, 2019

索引用語：小児，尿道カルンクル，外陰部出血，腔腫瘍

はじめに

尿道カルンクルは通常、閉経後の女性の外尿道口後壁に発生する尿道の良性ポリープである。病因は明確に示されていないが、いくつかの仮説があり、尿道上皮下の感染による慢性炎症、外傷、エストロゲンの低下による尿道上皮の萎縮などが誘因となっていると考えられている。組織学的には種々の程度の尿道粘膜上皮下の炎症性変化、浮腫、過形成、血管増生、線維化を伴っており、病理組織学的分類としては血管腫型、乳頭状型、肉芽種型の3型に分けられる¹⁾。尿道カルンクルは視診上、限局性の鮮紅色～暗赤色の粘膜腫脹であり、触診上1～2 cmの柔らかい腫瘤として触れる。類似した病変として尿道脱があるが、尿道脱では全周性に尿道粘膜が脱出しており、限局性の粘膜脱出である尿道カルンクルとは異なっている。確定診断は生検によってなされるが、診断には必ずしも生検は必要ではない。尿道カルンクルの小児例はこれまで、20例ほどしか報告がなく、一般小児科医にとっては経験することが稀な

疾患と言えるが、成人では視診・触診で診断されている疾患であり、これは小児にも同様であり、過剰な検査や長期の入院期間は必ずしも必要ではないと考える。上記のような背景から、小児科医がその存在・治療内容を認識しておく事は重要であると考え。今回我々は7歳女児の尿道カルンクルの症例を経験した。当初、本疾患を想定していなかったことから診断までに時間を要し、入院期間が遷延してしまった。今後小児科領域において、本疾患が広く認識され、同様の症例における診療の参考になることを期待し、過去の文献もふまえてこれを報告する。

症 例

7歳7ヶ月，女児

主訴：外陰部の出血

既往歴：特記事項なし 初経未

家族歴：特記事項なし

現病歴：入院の前日の起床時から、児が下着に血液が付着していることに気づき、何度も下着を履きかえていた。

1, 2, 3, 4) 〒143-8541 東京都大田区大森西 6-11-1

*Corresponding Author: tel: 03-3762-4151

e-mail: shouta.tanaka@med.toho-u.ac.jp

DOI: 10.14994/tohoigaku.2018-021

受付：2018年5月14日，受理：2018年10月1日

東邦医学会雑誌 第66巻第2号，2019年6月1日

ISSN 0040-8670, CODEN: TOIZAG

同日夜間から排尿開始時の疼痛を自覚するようになった。受診当日も出血が持続しており、前医を受診し、その際に外陰部に腫瘍性病変・出血を認め、腔外傷を疑われ当院紹介受診となった。当院受診時も同様の所見を認め、外陰部の出血、及び、腫瘍性病変の精査目的に入院とした。

入院時身体所見：身長 123.6 cm (+0.01 SD)、体重 23.7 kg (-0.02 SD)

意識清明、体温 36.6℃、脈拍 72/回、呼吸数 30/分、血圧 96/50 mmHg

眼球結膜黄染なし、眼瞼結膜貧血なし

口腔内出血斑なし、紫斑なし

呼吸音清、副雑音なし 心音純、過剰心音なし、心雑音なし

視診上、腔口 8 時～12 時方向に 10 mm×5 mm 程度の



図 1 初診時の外陰部の所見
右側の腔粘膜が発赤・腫脹していると判断した。

暗赤色の腫瘍性病変を認めた。触診上は軟、触診により疼痛を認めた (図 1)。

入院時検査所見 (表 1)：入院後に行った検査では血算・生化学・凝固・内分泌学的検査では異常なし。尿検査では赤血球 30-49 個/1 視野、白血球 50-99 個/1 視野認めた。

入院後経過：当初腫瘍を腔粘膜病変と考えており、腔の腫瘍性病変を疑い産婦人科医師にも診察を要請した。児の羞恥心に配慮し、検査の必要性を十分に説明したうえで、静脈麻酔を併用して病変の観察を行なった。しかし、病変の接触時の疼痛が強く、児の十分な静止が得られなかったことや、腔口が小さく最小のクスコでも挿入も困難であったことから外表面・腔内部の詳細な観察は困難であった。腹部・骨盤の造影 CT・MRI で浸潤や転移巣の検索も行ったが、異常は認められなかった。精査を進める間に、病変が腔粘膜の感染症ではないかとの予測のもと、抗菌薬の内服治療 (Cefdinir 9 mg/kg/日)、外用治療 (Nadifloxacin 軟膏) も並行して行なったが反応を示さず、入院後も病変からの出血、疼痛は持続した。

最終的に腔腫瘍を疑い全身麻酔下の観察、生検を施行した。全身麻酔下で尿道バルーンを挿入した状態で病変を観察したところ、右側腔粘膜腫脹と考えていた部位は尿道口後壁から逸脱した尿道粘膜であった (図 2)。病変部位の部分生検を施行し、手術を終了とした。生検で得られた尿道粘膜には異型細胞はなく、炎症性肉芽組織を認めた。全身麻酔下での外表所見と病理所見から尿道カルンクルと診断した。総入院期間は 21 日を要した。その後外来にて抗菌薬の外用治療 (Gentamicin 軟膏) のみで経過観察を行った所、約 6 ヶ月後に消退した。以降再発は認めず 2 年経過している。

表 1 入院時検査所見

血算		凝固		尿検査	
WBC	8000 μ l	PT-INR	1.1	pH	7
RBC	427 万/l	APTT	32.8 秒	潜血	(3+)
Hb	12.3 g/dl	フィブリノゲン	249 mg/dl	蛋白	(\pm)
Ht	36 %	D ダイマー	0.8 μ g/ml	白血球	(3+)
Plt	25.7 万/l	FDP	<2.5 μ g/ml	亜硝酸塩	(-)
生化学		内分泌学的検査		尿沈渣	
TP	7.4 g/dl	FSH	2 mIU/ml	赤血球	30-49 /1 視野
ALB	4.2 g/dl	LH	<0.1 mIU/ml	白血球	50-99 /1 視野
Na	140 mEq/l	E2	<5.0 pg/ml		
K	3.8 mEq/l				
BUN	14 mg/dl				
Cr	0.36 mg/dl				
AST	25 IU/l				
ALT	14 IU/l				
LDH	239 U/l				

考 察

尿道カルンクルの小児例は稀である。閉経後の成人女性ではエストロゲン低下による粘膜萎縮が病因の一つとなっているため、成人では小児より発症頻度が高いと推定される。

尿道カルンクルの典型的な肉眼所見は外尿道口後壁に認める鮮紅色～暗赤色の腫瘤性病変である。確定診断は生検によってなされるが、成人では視診・触診にて診断可能であるとされている。しかしながら学童期～思春期の女兒で



図2 尿道バルーン挿入時の外陰部の所見
尿道後壁からの粘膜脱出を認める。

は羞恥心が強く、外性器の発育が未熟であるため、成人と同様の婦人科診察が困難な場合もあると考える。本症例では病変部位の疼痛が強かったことや、児の体格に合うクスコが無かったこともあり、視診や触診から得られる情報が少なく、視診や触診だけでは診断には至らなかった。表2に過去に報告のあった、小児尿道カルンクルの症例²⁻⁹⁾を示す。これらはPubMed, および医学中央雑誌にて「尿道カルンクル」「尿道カルンケル」をKey Wordにし、検索した英語・日本語の論文、学会報告である。成人では男性の症例報告もあるが¹¹⁾¹²⁾、小児の症例は全て女兒であった。全症例、生検にて確定診断が行われており、本症例と同様であった。Ki Kyung³⁾らの報告では、本症例と同様に麻酔下で緊張を取った際に初めて詳細な外陰部の肉眼的所見を得たとの記載がある。この報告は本症例と類似した経過で診断された症例と考えられ、小児の尿道カルンクルの診断の困難さが伺える。

発症年齢に関しては、最年少児の報告はBrasileiro⁹⁾らの報告であり、診断時の月齢は3ヶ月であった。その他の症例では2歳代と7歳から9歳に2峰性の分布を認めた。病理所見上、低月齢で発見された症例では、炎症所見に乏しく、異所性腸粘膜を伴っており、先天性と推定されていた^{4,9)}。先天性と推定された症例以外は肉芽腫型もしくは血管腫型であり、炎症性肉芽組織、新生血管の増生を伴っていた。これらは小児においても先天性の症例を除けば、成人と同様に何らかの炎症が尿道カルンクルの形成に関与している証拠ではないかと考える。

症状としては先天性の記載があった症例を除き、多くの

表2 過去の症例報告

	年齢	サイズ (cm)	部位	症状	診断	病理	治療	予後
Türkeri ²⁾	9歳	1	尿道口後壁	性器出血 頻尿	生検	血管腫型	完全切除	再発なし
Ki Kyung ³⁾	2歳5か月	0.6	尿道後壁 (中部)	性器出血 排尿時痛	生検	血管腫型	完全切除	再発なし (2年間)
OSMO ⁴⁾	2歳7か月 (先天性)	0.7	不明	無症状	生検	異所性腸粘膜	完全切除	詳細不明
今治 ⁵⁾	2歳	不明	尿道口後壁	性器出血	生検	不明	完全切除	再発なし
馬場 ⁶⁾	8歳	1.5	尿道口	性器出血 排尿時痛	生検	不明	完全切除	再発なし
東 ⁷⁾	9歳	1	尿道口後壁	無症状	生検	血管腫型	完全切除	再発なし
Chiba ⁸⁾	9歳	2	尿道口後壁	性器出血	生検	血管腫型	ステロイド外用 (6ヶ月間)	再発なし (3年間)
Brasileiro ⁹⁾	3か月 (先天性)	1.6	尿道口後壁	無症状	生検	異所性腸粘膜	完全切除	再発なし (3年間)
本症例	7歳7か月	1	尿道口後壁	性器出血 排尿時痛	生検	肉芽腫型	抗菌薬外用 (6ヶ月間)	再発なし (2年間)

本症例を含めた尿道カルンクルと診断された9例の詳細。

5-7) は各学会での症例報告。上記の他 Campbellら¹⁰⁾が11例の報告を行っているが、詳細は不明である。

症例で外陰部からの出血を認め、本症例と同様であった。その他、頻尿や排尿時痛の報告はあったが、尿閉を来した症例はなかった。

治療に関して、過去の症例では全身麻酔下での完全切除を行っている症例が多い。成人では症候性の尿道カルンクルに対しては、2ヶ月から3ヶ月のエストロゲンクリームの外用治療を行い経過観察することが一般的である。腫瘍が巨大な症例や外用薬治療に抵抗性の症例で生検と外科的切除が考慮されている。Chibaら⁸⁾は小児の尿道カルンクルにおいて部分切除生検にて診断をした後、ステロイド外用薬治療を行い、有効であったと報告している。このような事実から外科的完全切除は成人同様に、外用薬治療を行なった後に考慮することも可能であると考えられる。しかし、小児例での外用薬治療では、ステロイド外用薬を用いたChibaらの症例も、抗菌外用薬を用いた今回の症例も治癒までに5ヶ月から6ヶ月程度の治療期間を要しており、エストロゲンクリームを用いた成人例よりも治療期間が長期になる可能性がある。手術や全身麻酔の合併症の説明は勿論だが、外用薬治療の治療期間が長期になる可能性があることを両親が十分に説明してから、治療を行う必要があると考える。また、臨床的に尿道カルンクルと診断した症例のうち、最終的に7%の症例で尿路上皮癌と診断したとの報告もあり¹⁾、外用薬での経過観察を行う場合、常に悪性腫瘍の可能性を念頭に置く必要があると考える。外用薬の選択に関しては、成人では慢性炎症に加えてエストロゲンの低下による粘膜萎縮が病因に関与していると考えられており、エストロゲンクリームが選択されている。小児でも同様に慢性炎症が関与されていると考えられており、Chibaらの報告では、ステロイド外用剤治療が選択されていた。今回の症例では感染による慢性炎症を病因と考え、抗菌薬の外用薬を選択した。結果として、Chibaらの報告と比較して治療期間の遷延を認めることはなかった。外用薬の選択に関しては、更なる病理所見の検討による病因究明や、今後の症例の積み重ねが必要と考えられる。

この様に尿道カルンクルの小児例はその希少性、婦人科診察の困難さなどから、経験のない小児科医にとっては診断に難渋する例が多いと考える。しかしながら疾患の特性や治療内容を認識していれば外来での経過観察も可能な疾患であり、不要な検査や入院期間の長期化を回避すること

ができると考える。

結 語

尿道カルンクルの小児例を経験した。尿道カルンクルは成人では視診・触診にて十分診断可能な疾患であり、外用薬による外来経過観察も行われている。しかし、小児ではその希少性、婦人科診察の困難さから診断・治療に難渋する例が多いと考える。小児の外陰部の粘膜腫脹・出血を認めた際は尿道カルンクルも鑑別に入れることが必要だと考える。

Conflicts of interest : 本稿作成に当たり、開示すべき conflict of interest (COI) は存在しない。

文 献

- 1) Conces MR, Williamson SR, Montironi R, Lopez-Beltran A, Scarpelli M, Cheng L. Urethral caruncle: clinicopathologic features of 41 cases. *Hum Pathol.* 2012; 43: 1400-4.
- 2) Türkeri L, Simşek F, Akdaş A. Urethral caruncle in an unusual location occurring in prepubertal girl. *Eur Urol.* 1989; 16: 153-4.
- 3) Kim KK, Sin DY, Park HW. Urethral caruncle occurring in a young girl. *J Korean Med Sci.* 1993; 8: 160-1.
- 4) Järvi OH, Marin S, de Boer WG. Further studies of intestinal heterotopia in urethral caruncle. *Acta Pathol Microbiol Immunol Scand A.* 1984; 92: 469-74.
- 5) 今治玲助, 大平知世, 向井 亘, 佐伯 勇, 秋山卓士. 外陰部出血を反復した小児尿道カルンクルの1例. *西日泌* 2015; 77: 150-1.
- 6) 馬場恭子, 関根芳岳, 栗原聰太, 周東孝浩, 新井誠二, 古谷洋介, ほか. 小児尿道カルンクルの1例. *泌外* 2015; 28: 837.
- 7) 東 慧, 井原達也, 山岸 敬, 神家満学, 土田孝之, 武田正之. 10歳女児に発症した尿道カルンクルの一例. *泌外* 2015; 28: 1586.
- 8) Chiba M, Toki A, Sugiyama A, Sukanuma R, Osawa S, Ishii R, et al. Urethral caruncle in a 9-year-old girl: a case report and review of the literature. *J Med Case Rep.* 2015; 9: 71.
- 9) Brasileiro LF, Dias Pereira LA, Miranda ML, de Freitas LL, Marques-de-Faria AP, Maciel-Guerra AT, et al. Lipomatous nevus and urethral caruncle mistaken for ambiguous genitalia in a female infant. *J Pediatr Endocrinol Metab.* 2016; 29: 233-6.
- 10) Campbell MF. Radiologic diagnosis of urinary tract tumors in infants and children. *Radiology.* 1950; 54: 646-58.
- 11) Karthikeyan K, Kaviarasan PK, Thappa DM. Urethral caruncle in a male. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2002; 16: 72-3.
- 12) Sriprasad S, Kooiman GG, Hopster D, Muir GH. Urethral caruncle in a man. *BJU Int.* 2003; 92: e68.

A Difficult to Diagnose Urethral Caruncle in a Young Girl: A Case Report

Shouta Tanaka¹⁾ Yuki Fujimaki¹⁾ Kei Hasegawa¹⁾
Azusa Moriyama²⁾ Masato Sakai³⁾ Minoru Kuroiwa³⁾
Seiichirou Shishido⁴⁾ and Akira Ohara¹⁾

¹⁾Department of Pediatrics, Toho University Omori Medical Center

²⁾Department of Gynecology, Toho University Omori Medical Center

³⁾Department of Pediatric Surgery, Toho University Omori Medical Center

⁴⁾Department of Kidney Center, Toho University Omori Medical Center

ABSTRACT: Urethral caruncle is the most common benign tumor that develops in the urethra of post-menopausal women. Our patient was a 7-year-old girl with no medical history; she complained of vulvar bleeding and swelling of the vaginal mucosa. We suspected a malignant vaginal tumor and obtained a biopsy with the patient under general anesthesia. She was diagnosed as having a urethral caruncle based on the tumor appearance and pathological findings. Conservative therapy with an antimicrobial ointment was initiated, and the lesion disappeared after 6 months. Pediatric urethral caruncle is difficult to diagnose owing to its low morbidity; further, a gynecologic examination is necessary for the diagnosis. Thus, pediatricians should be aware of the possibility of urethral caruncle in young girls.

J Med Soc Toho 66 (2): 117–121, 2019

KEYWORDS: pediatrics, urethral caruncle, vulvar bleeding, vaginal tumor