

小児における傍外尿道口嚢胞および縫線嚢胞症例の臨床的検討

徳島大学大学院医歯薬学研究部泌尿器科学分野¹⁾ 高松市立みんなの病院²⁾

小林 早 紀*¹⁾・佐々木雄太郎¹⁾・安宅真利花¹⁾・角 陸 文 哉¹⁾・矢 野 哲 弘¹⁾
西 山 美 月¹⁾・湊 亮 詠¹⁾・塩 崎 啓 登¹⁾・大豆本 圭¹⁾・富田諒太郎¹⁾
楠 原 義 人¹⁾・布 川 朋 也¹⁾・山 口 邦 久¹⁾・山 本 恭 代¹⁾・古 川 順 也¹⁾
高 橋 正 幸²⁾

(受付日: 2025 年 12 月 10 日, 受理日: 2026 年 1 月 14 日)

抄録:

【目的】本研究の目的は、当院で経験した傍外尿道口嚢胞・縫線嚢胞の臨床像と経過を検討する事である。

【対象と方法】2000 年 1 月から 2024 年 12 月に当院で傍外尿道口嚢胞もしくは縫線嚢胞と診断された 18 歳以下の 40 例を検討した。

【結果】症例は全例男児で、傍外尿道口嚢胞は 30 例、縫線嚢胞は 10 例だった。初診時の年齢中央値は、傍外尿道口嚢胞は 4.0 歳、縫線嚢胞は 7.5 歳であった。臨床経過は、傍外尿道口嚢胞では、自然消退が 2 例、経過観察が 7 例、手術が 21 例であった。縫線嚢胞では経過観察が 2 例、手術が 8 例であった。経過観察の 11 例は全例無症状であった。手術症例の 29 例中、8 例が症状を有した。傍外尿道口嚢胞径に関し、手術症例での症状の有無は有意差は見られなかった ($p = 0.10$) が、無症状手術例と経過観察症例で有意差を認めた ($p = 0.03$)。ROC 解析より、4 mm 以上の症例で手術を選択する傾向にあった。

【結語】今回の検討では、手術症例の半数以上が整容面を目的とした治療であり、傍外尿道口嚢胞では無症状であっても 4 mm 以上であれば手術を希望する傾向にあった。一方縫線嚢胞に関しては、症状など積極的に手術を検討する所見がなければ、大きさによらず経過観察を希望する症例も見られた。治療判断には症状、整容面、家族の心理的要素を総合的に考慮する必要がある。(西日泌尿. 88 : 311-316, 2026)

キーワード: 傍外尿道口嚢胞, 縫線嚢胞, 小児

緒 言

傍外尿道口嚢胞と縫線嚢胞は、いずれも男児にみられる外陰部嚢胞性疾患である。いずれも良性疾患であり、多くは無症状のまま経過するが、一部の症例では排尿症状や感染、嚢胞増大などを契機に診断される。これらの疾患は、臨床的には自然軽快する場合もあるが、整容的問題や保護者の不安から手術治療が選択されることも少なくない。良性疾患がゆえに治療適応の判断は医学的指標(症状、感染の有無など)だけでなく、保護者の心理的要素や整容的要望が大きな影響を及ぼす。症状がないにもかかわらず手術が選択されるケースが一定数存在し、

逆に嚢胞径が大きくても症状がなければ経過観察を希望する保護者もいる。このように、治療選択は単純な医学的基準では整理できず、個々の家族背景や価値観が影響するため、臨床現場ではしばしば説明や意思決定の難しさが生じる。本研究の目的は、当院で経験した傍外尿道口嚢胞および縫線嚢胞の小児症例を後方視的に検討し、その臨床像、治療経過および予後を明らかにすることである。

対象と方法

2000 年 1 月から 2024 年 12 月までの 25 年間に当院を受診し、傍外尿道口嚢胞または縫線嚢胞と診断された 18 歳以下の 40 例を対象とした。診療録を用いて、年齢、受診科、診断経緯、初診時所見、嚢胞径、臨床症状、治療法、経過観察期間および転帰を後方視的に検討した。

嚢胞径は外来診察時にノギスを用いて直接計測し、嚢

* 〒770-8503 徳島県徳島市蔵本町 3 丁目 18-15
TEL 088-633-7159, FAX 088-633-7160

胞の最大径を mm 単位で計測した。計測は担当医師による視診下で行われた。嚢胞は比較的整形であることが多く、最大径を用いた評価を採用することで測定誤差の最小化に努めた。治療方針の決定は、嚢胞が良性であること、自然消退の可能性、外科的切除の方法やリスクについて説明を行い、その上で経過観察もしくは外科的切除を保護者あるいは患児本人の希望に委ねた。統計学的解析には Mann-Whitney U 検定および Receiver Operating Characteristic (ROC) 解析を用いた。有意水準は両側検定で $p < 0.05$ とした。統計解析には EZR を使用した。

結 果

1. 患者背景 (Table 1)

対象となった 40 例はすべて男児であった。内訳は、傍外尿道口嚢胞が 30 例 (75%), 縫線嚢胞が 10 例 (25%) で全例陰茎縫線部であった。初診時の年齢は、傍外尿道口嚢胞は中央値で 4.0 歳 (Interquartile Range (IQR) 1-11), 縫線嚢胞は中央値で 7.5 歳 (IQR 3.2-10.3) であった。診断を下した診療科は、泌尿器科が 32 例 (傍外尿道口嚢胞: 27 例, 縫線嚢胞: 5 例) (80%) と最も多く、次いで小児外科が 5 例 (傍外尿道口嚢胞: 2 例, 縫線嚢胞: 3 例) (12.5%), 形成外科が 3 例 (傍外尿道口嚢胞: 1 例, 縫線嚢胞: 2 例) (7.5%) であった。受診契機は、傍外尿道口嚢胞は、無症状 (整容的理由で受診) は 24 例 (80%), 疼痛が 3 例 (10%), 尿線偏移が 3 例 (10%) であった。縫線嚢胞は、無症状 (整容的理由で受診) は 6 例 (60%), 他疾患受診の契機に指摘されたのは 2 例 (20%), 疼痛が 2 例 (20%) であった。

初診時の嚢胞径は、傍外尿道口嚢胞では中央値 3 mm (IQR 3-4), 縫線嚢胞では中央値 8.5 mm (IQR 8-9) であった。

2. 臨床経過 (図 1, 図 2)

全 40 例の臨床経過は、大きく「経過観察」と「手術」に分けられた。傍外尿道口嚢胞症例では、9 例 (30%) が経過観察となり、そのうち 2 例 (7%) が経過中に自

然消退した。21 例 (70%) が手術に至った。縫線嚢胞症例では、2 例 (20%) が経過観察となり、8 例 (80%) が手術に至った。初診時に症状を有していた 8 例は、全例手術を選択された。初診時に無症状であっても、傍外尿道口嚢胞では 15 例, 縫線嚢胞では 6 例は整容目的に手術を希望された。診療録の記載を確認すると、「外観への懸念」や「将来的な心理的影響を心配する保護者の不安」、「入学・進学前に治療をしておきたい」といった理由が、手術選択の背景としてしばしば記録されていた。

経過観察中に自然消退を認めた傍外尿道口嚢胞 2 例は、いずれも初診時年齢は 1 歳未満、初診時嚢胞径は 2 mm であった。再診 (約 6 カ月後) 時には、両症例とも嚢胞は消失していた。

2.1 経過観察症例

経過観察を選択した 11 例は、傍外尿道口嚢胞・縫線嚢胞共に全例無症状だった。嚢胞径は、傍外尿道口嚢胞では中央値 3 mm (IQR 2-3), 縫線嚢胞では中央値 8.5 mm (IQR 8-9) であった。経過観察期間は、傍外尿道口嚢胞は中央値 372 日 (IQR 179-435), 縫線嚢胞は中央値 239 日 (IQR 130-347) であった。経過観察の間隔は初診から 1 年後に再診とする場合が多かった。経過観察期間中は外用薬の使用等は行っておらず、症状の新規出現や嚢胞の増大は認められなかった。

自然消退した傍外尿道口嚢胞の 2 例は、どちらも 2 mm と非常に小径で初診から半年以内に自然消退した。再発は見られなかった。

2.2 手術症例

傍外尿道口嚢胞では、初診時の嚢胞径は中央値 6.5 mm (IQR 5.8-8), 手術施行年齢は中央値で 8 歳 (IQR 4-14) であった。手術は初診日から中央値 145 日 (IQR 74-356) で施行されていた。全例全身麻酔下に嚢胞完全摘除を施行されており、5-0 もしくは 7-0 吸収性縫合糸を使用していた。手術時にも嚢胞径を測定していたが、初診時よりも増大は見られなかった。術後は全例合併症は見られず、初診時に症状を呈した症例も術後に症状は消失した。

Table 1 Background

	PARAMEATAL CYSTS (n=30)	RAPHE CYSTS (n=10)
age at first visit (median, IQR)	4.0(1-11)	7.5(3.2-10.3)
reason for consultation	asymptomatic 24 (80%) pain 3 (10%) deviated urinary stream 3 (10%)	asymptomatic 6 (60%) incidental finding 2 (20%) pain 2 (20%)
size at first visit (median, IQR)	3 mm (3-4.0)	8.5 mm (8-9)

縫線嚢胞では、嚢胞径は中央値 8.5 mm (IQR 8-9)、手術施行年齢は中央値で 10.5 歳 (IQR 5-15.3) であった。手術は初診日から中央値 107 日 (IQR 57-161) で施行されていた。全例全身麻酔下に嚢胞完全摘除を施行され、5-0 もしくは 6-0 吸収性縫合糸を使用していた。術後は全例合併症は見られず、初診時に症状を呈した症例も術後に症状は消失した。

3. 統計学的検討

傍外尿道口嚢胞の大きさに関し統計解析を行った結果、

以下の知見が得られた。①手術症例では、無症状症例と有症状症例の間で、有意差は認められなかった (中央値 6 mm vs 7 mm, $p=0.10$)。②無症状症例では、経過観察症例と手術症例を比較すると、手術症例の方が有意に大きかった (中央値 3 mm vs 6 mm, $p=0.03$)。③有症状症例かつ手術症例と経過観察症例を比較すると、手術症例の方が有意に大きかった (中央値 7 mm vs 3 mm, $p = 0.001$)。

ROC 解析の結果、嚢胞径による手術施行の識別能は

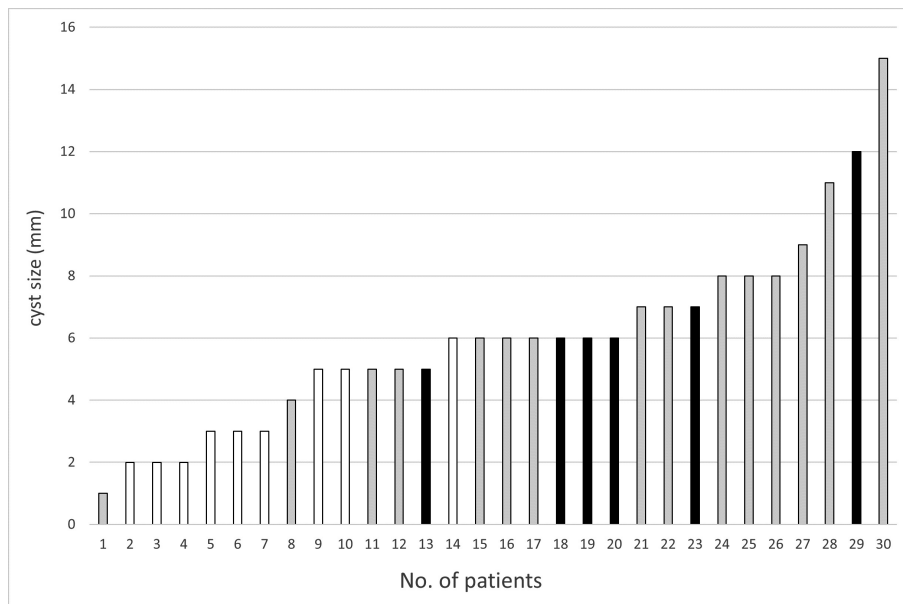


図1 傍外尿道口嚢胞症例の嚢胞径分布 (白:経過観察, 灰:無症状で手術施行, 黒:有症状で手術施行)

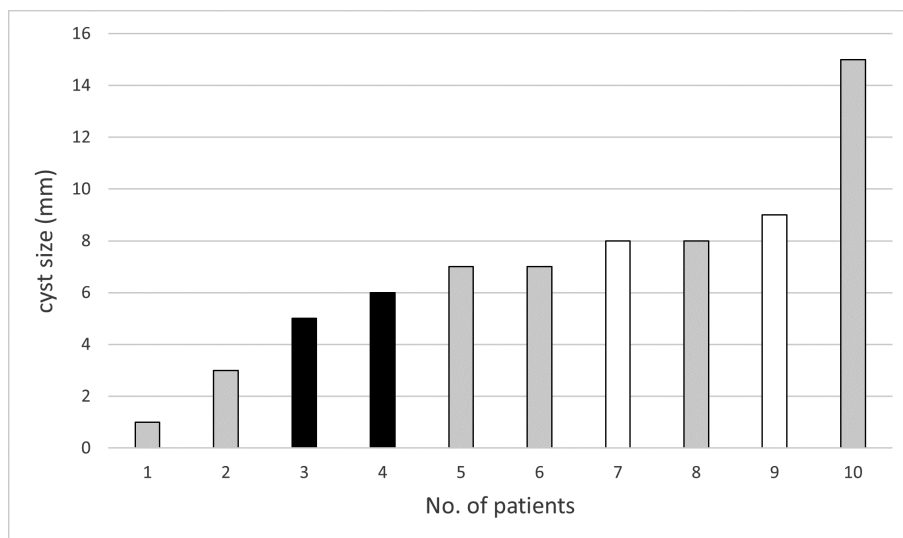


図2 縫線嚢胞症例の嚢胞径分布 (白:経過観察, 灰:無症状で手術施行, 黒:有症状で手術施行)

Area Under the Curve (AUC) = 0.853 と良好であった。最適カットオフ値 4 mm であり、感度 95%，特異度 63%を示した (図 3)。さらに無症状症例に限定した解析においても識別能は AUC = 0.817 と良好であり、同様に最適カットオフ値 4 mm で、感度 89%，特異度 71%を示した (図 4)。

考 察

陰茎に発生する嚢胞性疾患は「性器会陰部縫線嚢胞および管腔」と定義され、解剖学的位置により①尿道口唇部 (傍外尿道口嚢胞)、②包皮小体部、③陰茎縫線部、④陰囊縫線部、⑤会陰部縫線部の 5 群に分類される¹⁾。臨床現場では小児期に遭遇する機会は少なくなく、傍外尿道口嚢胞は男児乳児検診で 500 人中 3 人に認めたとする報告もあるが¹⁾、明らかな罹患率は不明である。両者は発生機序は異なるが形態学的に類似しており²⁾³⁾、1 cm 以下で単房性が多く、多くは無症候性だが、尿線偏位や疼痛、感染が合併し発赤・疼痛を来すこともある。

本研究で対象とした 40 例の解析では、傍外尿道口嚢胞・縫線嚢胞ともに幼少期での受診が多く、形態的には 1 cm 未満・単房性が大部分で、無症状例が多数を占めた。症状として尿線偏位や疼痛が認められたが、症状の発現は嚢胞径に依存せず、炎症や外的刺激などの別因子が影響していると思われた。

治療は穿刺のみでは再発する事が多く、外科的摘除が基本となる⁴⁾。治療適応としては、有症状症例や 2 年間経過観察するも自然に縮小・消退せず整容面から手術希

望がある場合や⁵⁾、直径 5 mm 以上の有症状で家族からの手術希望がある場合などと報告されているように⁶⁾、実臨床でも整容面の理由から若年時での手術を希望されることが少なくない。しかし家族も、自身の主観的な判断材料を元に、どのタイミングで治療介入を希望するかは非常に悩ましい問題と思われる。本研究では、傍外尿道口嚢胞は無症状例において手術群は経過観察群より嚢胞径が大きく、嚢胞径が家族の手術希望に影響する一因であることが示された。また ROC 解析では 4 mm 以上で手術が選択される傾向が示された。これは医学的適応ではなく“家族が手術を希望しやすい”というあくまで意思決定の傾向を数値化したに過ぎず、補助的解析としての位置付けと考える。ROC 解析は本来疾患の有無などの診断能評価に用いられる統計手法であるが、治療への受諾行動や服薬アドヒアランスなど⁷⁾⁸⁾、患者の意思決定や行動をアウトカムとした予測モデルの判別能評価にも利用されている報告が散見される。本研究における『手術希望の有無』も、こうした家族の意思決定に基づくアウトカムの一種であり、その判別能評価に ROC 解析を用いることは妥当と考えた。縫線嚢胞に関しては症例数は少なかったが、こちらも症状・整容面を中心に治療が選択される症例が多く見られた。手術を選択した症例は、嚢胞径に関わらず術後経過はいずれも良好で、尿道口狭窄等の術後合併症は見られず、術前より見られた症状は消失していた。本研究結果は、傍外尿道口嚢胞・縫線嚢胞に対して現在広く実施されている「無症状であっても家族が希望すれば手術を行う」方針が、安全性

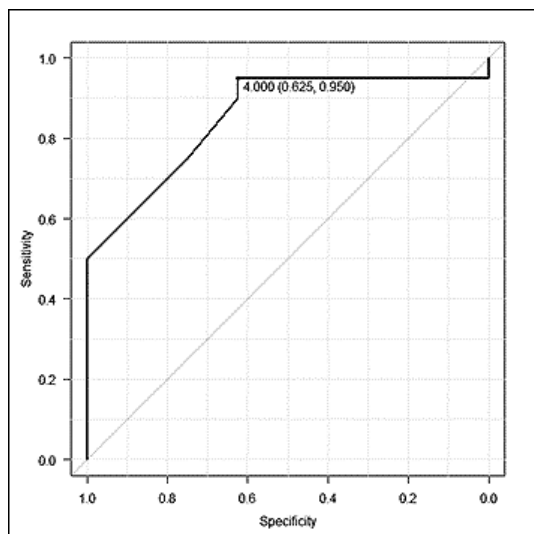


図 3 傍外尿道口嚢胞径と手術施行の有無 (AUC:0.853, 95% 信頼区間: 0.707-0.99)

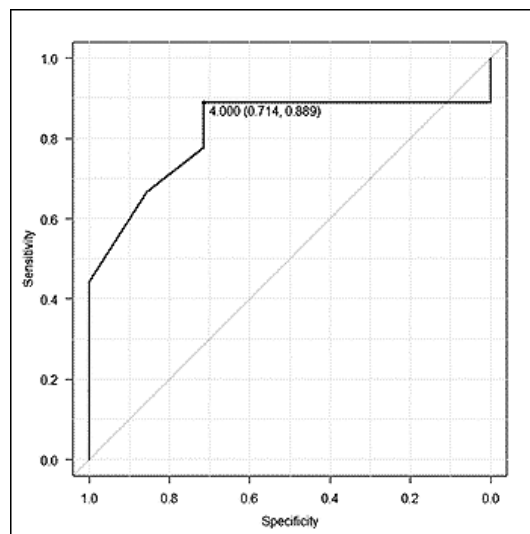


図 4 傍外尿道口嚢胞・無症状症例での嚢胞径と手術施行の有無 (AUC : 0.817, 95% 信頼区間 : 0.585-1)

の面で裏付けられることを示した。

一方経過観察症例については、今回の検討では自然消退症例は少数であったが、Matsuyama ら⁴⁾の報告では傍外尿道口嚢胞・縫線嚢胞のそれぞれ 25%, 33% に自然消退がみられ、多くは生後 2 年以内に自然消退したとされる⁵⁾。さらに Tanaka ら⁶⁾の研究でも 22% が自然消退し、特に 5 mm 未満の傍外尿道口嚢胞は自然消退の可能性が示されている。この知見は、本研究で得られた「4 mm が治療選択に影響する」という結果を支持しつつ、経過観察を期待できる症例群をより明確に分類する上で有用と思われる。

以上より、傍外尿道口嚢胞・縫線嚢胞の治療方針は症状のみで判断すべきではなく、①嚢胞径、②整容面の問題・家族の心理的要因、③自然消退の可能性を総合して決定する必要がある。特に嚢胞径 4-5 mm を境に治療選択の傾向が変化する点は、家族への説明における客観的指標として有用であり、shared decision making を支援する材料となる。加えて術後合併症が比較的少なく、安全性が高い点も手術選択を後押しする。

本研究の限界として、第一に単施設・後方視的研究であること、第二に症例数が少ないため、AUC の 95% CI が広く、カットオフ値の再現性および一般化に限界があることが挙げられる。このカットオフ値は本研究集団における治療選択の傾向を反映した指標であり、臨床における絶対的な判断基準を示すものではない。また嚢胞径の測定は外来視診に基づいており、測定者間の誤差を完全には排除できない点も考慮すべきである。治療方針の決定には保護者の意向や整容上の問題といった定量化困難な因子が大きく関与しており、これらを統計的に評価することは難しい。

今後の課題としては、症例をさらに集積し、嚢胞径や症状、年齢など複数の因子に加え、保護者の心理的側面や整容上の懸念を質問票を通じて明らかにすることで、医学的適応と社会心理的要因を踏まえた治療方針を提示できる可能性がある。

結 語

傍外尿道口嚢胞や縫線嚢胞は、症状や嚢胞径に加えて家族の整容面への関心や心理的要素が治療への意思決定に影響していた。本研究では傍外尿道口嚢胞は嚢胞径 4 mm 以上で手術が選択される傾向が見られ、家族への説明における客観的指標として有用と思われた。また嚢胞径に関わらず手術において合併症もなく治療経過は良好であり、初診時に説明を行い治療方針を保護者の希望に委ねる現在の治療方針は妥当と思われた。

文 献

- 1) 市川篤二・他：尿路性器の先天異常．新臨床泌尿器全書．第 3 巻 B：138-149, 1986.
- 2) 荷見圭子・他：Cyst of the Penile Raphe の 3 例．臨床皮膚科．**39**：155-160, 1985.
- 3) 白瀧 敬・他：巨大な陰茎縫線嚢胞の 1 例．西日本泌尿器科．**74**：142-145, 2012.
- 4) Matsuyama, S. et al.: Long-term follow-up of median raphe cysts and parametatal urethral cysts in male children. *Urology*. **101**: 99-103, 2017.
- 5) Song, S. H. and Kim, D. S.: Neonate with a parametatal urethral cyst. *AME Case Rep*. **3**: 16, 2019.
- 6) Tanaka, K. et al.: Do parametatal urethral cysts in children need surgical excision? *Urology*. **167**: 198-200, 2022.
- 7) Mohammadi, T. et al.: Testing the external validity of a discrete choice experiment method: an application to latent tuberculosis infection treatment. *Value Health*. **20**: 969-975, 2017.
- 8) Meghani, S. H. and Knafl, G. J.: Patterns of analgesic adherence predict health care utilization among outpatients with cancer pain. *Patient Prefer Adherence*. **27**: 81-98, 2016.

CLINICAL OUTCOMES OF PARAMEATAL CYSTS AND RAPHE CYSTS IN CHILDREN

SAKI KOBAYASHI, YUTARO SASAKI, MARIKA ATAGI, FUMIYA KADORIKU,
TETSUHIRO YANO, MITSUKI NISHIYAMA, RYOEI MINATO, KEITO SHIOZAKI,
KEI DAIZUMOTO, RYOTARO TOMIDA, YOSHITO KUSUHARA, TOMOYA FUKAWA,
KUNIHISA YAMAGUCHI, YASUYO YAMAMOTO AND JUNYA FURUKAWA

Department of Urology, Tokushima University Graduate School of
Biomedical Sciences, Tokushima, Japan

MASAYUKI TAKAHASHI

Department of Urology, Takamatsu Municipal Hospital, Kagawa, Japan

Abstract :

Purpose : The aim of this study was to evaluate the clinical characteristics and outcomes of parameatal cysts and median raphe cysts in pediatric patients treated at our institution.

Patients and Methods : We retrospectively reviewed 40 patients aged ≤ 18 years diagnosed with either cyst type between January 2000 and December 2024. Clinical data, cyst diameter, symptoms, management, and outcomes were collected from medical records.

Results : Thirty children had parameatal cysts and 10 had median raphe cysts. The median age at presentation was 4.0 years for parameatal cysts and 7.5 years for median raphe cysts. Among parameatal cysts, two showed spontaneous rupture, seven were observed, and 21 underwent surgery. For median raphe cysts, two were observed and eight underwent surgery. All 11 patients managed conservatively were asymptomatic, whereas eight of the 29 surgically treated patients had symptoms. Among the parameatal cysts, cyst size did not differ significantly between symptomatic and asymptomatic surgical cases ($p = 0.10$). However, among asymptomatic patients, cysts were significantly larger in the surgical group than in the observation group ($p = 0.03$). ROC analysis suggested a tendency toward surgery when cyst diameter was ≥ 4 mm.

Conclusions : Over half of the surgical cases underwent treatment for cosmetic reasons. In parameatal cysts, asymptomatic patients were more likely to choose surgery when cysts measured ≥ 4 mm. In contrast, some cases of median raphe cyst were managed conservatively regardless of size in the absence of symptoms. Symptoms, cosmetic concerns, and family preferences should be considered when determining management.

(Nishinohon J. Urol. **88** : 311-316, 2026)

key words : parameatal cyst, raphe cyst, children
