膀胱粘膜下に発生した endosalpingiosis の 1 例

東京医科大学泌尿器科学教室 (主任: 三木 誠教授)

荒井 好昭 續 真弘 大久保雄平
相澤 卓 三木 誠

A CASE OF SUBMUCOSAL ENDOSALPINGIOSIS IN THE URINARY BLADDER

Yoshiaki Arai, Masahiro Tsuzuki, Yuhei Okubo,
Taku Aizawa and Makoto Miki
Department of Urology, Tokyo Medical College
(Director: Makoto Miki)

A 47-year-old woman was admitted when a mass in the urinary bladder was pointed out on ultrasound follow-up after hysterectomy for uterine myoma. Cystoscopy, ultrasonography, CT scan and MRI suggested a tumor in the muscle layers of the urinary bladder. Since the possibility of malignancy could not be ruled out, partial cystectomy was performed. The tumor was diagnosed as endosalpingiosis, a subclassification of mullerianosis histologically. The concept of endosalpingiosis has appeared recently and only 3 cases have been reported none of who had severe symptoms. Our case is the forth in the world. One of these cases had been treated with hormonal therapy as endometriosis, with no effect. Therefore, surgery is recommended as the first treatment of choice.

Key words: Endosalpingiosis, Mullerianosis, Urinary bladder

要旨: 47 歳女性, 子宮筋腫の診断で, 近医にて単純子宮摘出術を施行された後, 定期的に施行した超音波検査にて膀胱内腫瘍性病変を指摘された。膀胱鏡検査では, 前壁に表面平滑な拇指頭大の隆起が認められたが粘膜に異常は無かった。骨盤 CT にて周囲との境界明瞭な直径 3 cm 大の粘膜下腫瘍を認め, 造影効果は無かった。MRI では T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号で内部やや不均一な像がみられた。

その後の増大の可能性を考慮し, また悪性の可能性も否定できないため, 膀胱部分切除術を施行した。摘出標本は 4 cm × 2.5 cm × 2.5 cm, 12 g, 粘膜面には著変をみとめず, 断面は多胞性で, 褐色やや粘稠な内容液を含んでいた。組織学的には, 管状腺管構造の内面が繊毛円柱上皮で覆われており, muller 管由来の腫瘍性病変 (mullerianosis) である endosalpingiosis と診断した。

Endosalpingiosis は 1990 年に Batt が初めて提唱した比較的新しい概念であり, 本邦での膀胱発症例の報告はなく, 今までに世界で 3 例が報告されているのみである。強い自覚症状はなく, 外科的治療が第一選択であると考えられた。的確に日本語訳した文献がないため以下では endosalpingiosis のまま記載する。

キーワード: Endosalpingiosis, Mullerianosis, 膀胱

緒 言

Mullerianosis は 1990 年に Batt が提唱した概念であり, Muller 管由来の腫瘍性病変の総称である¹⁾。そのうち卵管類似組織の腫瘍性病変を endosalpingiosis と呼んでいる。今回我々は本邦で今までに報告のない膀胱粘膜下に発生した endosalpingiosis の 1 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: 47 歳, 女性。

主訴: 膀胱内腫瘍精査。

現病歴: 平成 9 年 2 月, 近医にて子宮筋腫の診断をうけ, 単純子宮摘出術が施行された。その後外来経過

図1 膀胱鏡では表面平滑な隆起を認め、一部に endometriosis を思わせる黒色の部分を認める(矢印)。

図2 腫瘍はMRI T1強調画像(左)で低調、T2強調(右)で高調な像を示した。

観察中に行った経膣超音波検査で膀胱内腫瘍性病変を指摘され、平成9年4月当科を紹介され受診した。

既往歴：帝王切開による出産を2回。

入院時検査所見：末血，生化学的検査では異常を認めず，尿沈査にて赤血球多数/視野，白血球10～15個/視野であった。また，尿細胞診，尿培養共に陰性であった。

膀胱鏡検査：前壁に表面平滑な拇指頭大の隆起を認め，粘膜面には一部に endometriosis を思わせる黒色の部分が見られた(図1.黒色の部分に矢印を示す)。

腹部超音波検査：膀胱粘膜下に内部均一な腫瘍を認

図3 摘出標本. 断面は多包性，褐色で粘潤な内容液を含んでいた(矢印)。

図4 管腔内面は絨毛円柱上皮で覆われており卵管内膜に類似している。

めた。

胸部単純X線：明らかな異常なし。

IVP：上部尿路に異常を認めなかった。

骨盤部CT：周囲との境界明瞭で，内部均一な直径3 cm大の腫瘍を認め，造影効果は示さなかった。

MRI：T1強調画像では，腫瘍内部はやや不均一で

表1 自験例を含め現在まで報告されている4症例

症例	年齢/ 性別	報告者	最大径 (cm)	主訴	治療	既往	年代
1	37歳/ 女性	Young et al	3～4	下腹部腫瘍	TUR	なし	1993
2	44歳/ 女性	Young et al	2～3	下腹部違和感	TUR	なし	1993
3	46歳/ 女性	Young et al	2	生理不順	TUR	帝王切開	1993
4	47歳/ 女性	自験例	3	偶然発見	膀胱部切	帝王切開 子宮筋種	1998

low intensity な像が見られ、T2 強調画像では high intensity を呈していた (図2)。

手術所見：膀胱粘膜下腫瘍の術前診断で1997年6月5日膀胱部分切除術を施行した。腫瘍は4 cm×2.5 cm×2.5 cm, 12 g. 粘膜面には著変を認めず、断面は多胞性で、褐色やや粘稠な内容液を含んでいた (図3)。

病理組織学的所見：膀胱粘膜には著変を認めず、腫瘍は筋層の中に留まっていた。筋繊維の中に境界明瞭な多数の管状腺管構造が見られ、管腔内面は核異型のない纖毛円柱上皮で覆われており、卵管内膜に類似していた (図4)。

以上の所見より muller 管由来の腫瘍性病変である endosalpingiosis と診断した。術後経過は良好で術後27日で退院。以後外来にて経過観察中であるが、現在も明らかな再発は認めていない。

考 察

Muller 管由来の腫瘍性病変は、①子宮内膜由来の endometriosis, ②子宮頸管由来の endocervicosis, ③卵管由来の endosalpingiosis の3つに大別される。これらが1つの腫瘍の中に混在している例も多く報告されており、3つをまとめて mullerianosis と呼んでいる。また、文献上では一部 muller 管由来の上皮を有する嚢胞性疾患である mullerian cyst が加えられることがある²⁾。

Mullerianosis は1990年に Batt が提唱した比較的新しい概念であり、彼の報告は骨盤内後腹膜発症例である。現在まで全体としての明らかな統計はないが、子宮内膜症を含め mullerianosis は腹膜及び腹腔内臓器に発症した例が多い。Endometriosis を始めとする mullerianosis の発生原因には現在幾つかの説が唱えられており、体腔上皮化生説と移植説が有力なもので広く知られている³⁾。体腔上皮化生説は、胎性期の胎腔上皮から分化した腹膜中皮が子宮内膜を形成する能力があるというもののだが、現実には腹膜中皮が膀胱粘膜

下に移植されたとは考えにくい。

移植説のうち経卵管性移植説は、月経血や剥脱子宮内膜組織などが卵管を通過して腹腔内に逆流し、生着するというものであるが、腹膜外で発症するものでは考えにくい。本症例のような膀胱あるいは肺、腋窩、大腿などが遠隔発症の好発部位であり、移植説の中の脈管性転移説は遠隔発症の説明に適している。しかし実際には子宮から離れた所でも発生場所は限られており、また剥脱した細胞の viability がそれほど高いとは考えにくく疑問点も残る。いずれにせよ endometriosis と同様に endosalpingiosis もまた明らかな発生原因は不明であるといわざるを得ず、さらに症例をかさねて検討する必要がある。

膀胱の endometriosis は本邦で約100例の報告がある。一方膀胱 endocervicosis は、1992年 Clement の報告以来、欧米にて現在まで16例が報告されている⁴⁾が本邦での報告はない。また膀胱 endosalpingiosis も1996年の Young の3例が初めての報告で⁵⁾、自験例は世界で4例目である (表1)。但し、mullerianosis の概念が新しいため、1990年以前の症例では endometriosis に含まれ報告されている可能性がある⁶⁾。本邦では子宮内膜症の中に endosalpingiosis が含まれるか再検討した報告はない。従って子宮内膜症と endometriosis は今回区別して記載する。また、de Hoop らは腹膜発症例の endometriosis の35.1%に endosalpingiosis が含まれていたとしている⁶⁾。

報告されている膀胱 endosalpingiosis の発症年齢は30～40歳代、大きさは全て直径2～4 cm 大とそれほど大きいものはない。症状には特徴的なものはなく、本例では無症状であった。すなわち endometriosis とは異なり⁷⁾、強い自覚症状のないことが本症の特徴であろう。これは卵管内膜の性質上、月経周期に一致した増大や疼痛の発現がないことがその大きな理由であると考えられる。但し、腹膜発症例では70%に慢性的な腹

痛が見られたと de Hoop らは報告している⁶⁾。治療は手術による摘除が全ての症例で選ばれていた。うち 1 例は endometriosis と考えられたため、LH-RH agonist による治療が術前に行われていたが無効であったという。

術式については既報告 3 例では経尿道的手術が施行されていた。これらの報告例では腫瘍の形状についての詳細な記載はないが、臨床的には境界が比較的明瞭で月経周期に一致した変化がなければ TUR を考慮してもよいかもしれない。我々の症例では膀胱鏡所見で粘膜下からの圧迫も強く、endometriosis や悪性の可能性も否定できなかったため、膀胱部分切除術を施行した。CT や MRI 等の画像での術前診断は確立されておらず、現段階では有用とは言えない。内視鏡所見を含め今後症例を重ね、術前診断につき検討すべきであろう。4 症例とも術後の再発や転移は認めておらず、経過は良好である。

文 献

- 1) R.E. Batt, R.A. Smith, G.M. Buck, M.F. Severino and J.D. Naples : Mullerianosis. *Prog. Clin. Biol. Res.*, **323**, 413—426, 1990.
- 2) David, G. Bostwick, Jorn, N. Eble : Non-neoplastic disorders of the urinary bladder. *Urologic Surgical Pathology*, 196—199, Mosby, USA, 1997.
- 3) 石丸忠之：子宮内膜症の発生論。産婦人科の実際, **45**, 149—157, 1990.
- 4) Philip, B. Clement, Robert, H. Young : Endocervicosis of the Urinary Bladder. *The American Journal of Surgical Pathology*, **16**, 533—542, 1992.
- 5) R.H. Young and P.B. Clement : Mullerianosis of the urinary bladder. *Mod Pathol*, **9**(7), 731—737, 1997.
- 6) de Hoop, T.A. and Mira, J., Thomas, M.A. : Endosalpingiosis and chronic pelvic pain. *Journal of Reproductive Medicine*, **42**(10), 613—616, 1997.
- 7) 川島吉良：産婦人科腫瘍学各論。産婦人科学書, **3**, 626—627, 金原出版, 日本, 1994.

(1998 年 7 月 7 日受付, 1999 年 3 月 25 日受理)