症例報告

腹腔鏡下に摘出した尿膜管嚢胞に類似するmesothelial cystの一例

田附興風会医学研究所北野病院産婦人科¹⁾、同病理部²⁾榊原敦子¹⁾、永野忠義¹⁾、宇治田麻里¹⁾、佛原悠介¹⁾、宮田明未¹⁾、吉川博子¹⁾、
辻なつき¹⁾、熊倉英利香¹⁾、寺川耕市¹⁾、弓場吉哲²⁾

Laparoscopically resected mesothelial cyst mimicking a urachal cyst

Atsuko Sakakibara¹⁾, Tadayoshi Nagano¹⁾, Mari Ujita¹⁾, Yusuke Butsuhara¹⁾, Hiromi Miyata¹⁾, Hiroko Yoshikawa¹⁾,
Natsuki Tsuji¹⁾, Erika Kumakura¹⁾, Koichi Terakawa¹⁾, Yoshiaki Yuba²⁾Department of Obstetrics and Gynecology¹⁾,Department of Pathology²⁾

The Tazuke Kofukai Medical Research Institute, Kitano Hospital

Objective: To report a rare case of a mesothelial cyst in the lower abdominal extraperitoneal space, mimicking a urachal cyst.**Case:** A 43-year-old nulligravid female complained of lower abdominal pain, ongoing for about 6 months. Physical examination revealed a pelvic mass reaching the height of the umbilicus. Magnetic resonance imaging showed a 15 × 6 cm cystic tumor in addition to a uterine leiomyoma and an ovarian endometriotic cyst. Laparoscopic surgery revealed that the huge cystic tumor extended into the lower abdominal extraperitoneal space, similar to a urachal cyst, and was adherent to the ovarian endometriotic cyst. The resected tumor was diagnosed pathologically as a mesothelial cyst.**Conclusion:** Mesothelial cysts occur most frequently in the peritoneal cavity of reproductive-aged women and are often accompanied by endometriosis. Endometriosis is often associated with pelvic peritoneal defects. This report suggests that a mesothelial cyst may extend into the lower abdominal extraperitoneal space through a peritoneal defect caused by endometriosis.**Key words:** mesothelial cyst, endometriosis, pelvic peritoneal defect

緒 言

mesothelial cystは、一般に骨盤内に多く¹⁾、後腹膜腔や大網^{2,3)}、鼠径ヘルニア嚢を巻き込む事もある⁴⁾と言われているが、本症例のように尿膜管嚢胞に類似した形態で、腹腔外に発育した報告はない。その名称は様々で、multicystic mesothelioma、(multilocular) peritoneal inclusion cysts、inflammatory cysts of the peritoneum、pseudocystなどと呼ばれる。mesothelial cystは、癒着により形成された空間に液体が貯留してできたもの⁵⁾で、典型的には、性成熟期女性に発生することが多い^{1,6,7)}。また、卵巣による腹水産生が、その成因に大きく関わると言われている。

今回内膜症に合併したmesothelial cystが、尿膜管嚢胞に類似して腹腔外に巨大嚢胞として発育し、術中診断に迷ったものの腹腔鏡下手術で摘出した症例を経験したので報告する。

症 例

症例：43歳、未経妊

主訴：下腹部痛

既往症：38歳胆石症の診断で胆嚢摘出術（開腹）

月経歴：初経12歳 月経不順 月経痛軽度 月経量やや多い

現病歴：数ヶ月前より持続する下腹部痛を認め、近医産婦人科を受診し、MRIで子宮筋腫および卵巣嚢腫を指摘され、手術施行目的で紹介受診とな

った。

初診時診察所見：上腹部正中に縦切開手術痕を認めた。BMI34の中等度肥満のため、内診所見は不十分であったが、下腹部正中に、臍高に達する軟な腫瘍を触知し、圧痛は明らかではなかった。

血液検査所見：CA19-9; 143.9U/ml、CA125; 55U/ml、CEA; 3.4ng/ml、Hb; 12.3g/dL、WBC; 7800/ μ L、CRP; <0.1mg/dL

MRI所見：子宮前壁に5 cm径の子宮筋腫を認めた。また、子宮の頭側に4 cm径のT1高信号、T2やや高信号の病変を認め、左卵巢内膜症性嚢胞を疑った。これらに接し、さらに腹側にT1低信号、T2高信号の15×6 cmの巨大嚢胞を認め、卵巢漿液性嚢胞腺腫または炎症性嚢胞を疑った。悪性を示唆する所見は認めなかった（図1-a, b）。

図1-a MRI矢状断T1強調画像

図1-b MRI矢状断T2強調画像

初診後経過：6ヶ月間経過観察したが、巨大嚢胞の大きさは著変なく、下腹部痛が持続するため、巨大嚢胞の診断および摘出と、卵巢嚢腫核出のため、腹腔鏡下手術を施行した。筋腫については、画像上一部内膜に近接する部分を認め、年齢より今後増大し過多月経を来す可能性があると判断したため、同時に核出術を施行した。

手術所見：クローズド法にて5 mmトロカールを挿入した後、左右上前腸骨棘内側にそれぞれ12mmと5 mmのトロカールを挿入し、5 mm 30度のスコープで、腹腔内を観察した。問題の巨大

嚢胞は、下腹部正中の壁側腹膜に覆われた新生児頭大の軟な腫瘍で、腹腔外に存在していた。術中所見では、その存在位置より、尿膜管嚢胞を疑った（図2-a）。まず左卵巢嚢腫を穿刺し、チョコレート様の内容液を認めた。続いて腹壁を軽く圧排し、刺入位置と巨大嚢胞との距離が十分であることを確認した上、下腹部正中に5 mmのトロカールを挿入した。気腹下では、巨大嚢胞と臍とは比較的距離があった。巨大嚢胞を覆う壁側腹膜にハーモニックで切開を加え、巨大嚢胞壁を把持し、周囲から剥離したところ、暗紫色の巨大嚢胞壁を認めた。これは尿膜管嚢胞に類似して、下腹部正中の腹直筋後面の筋膜と腹膜の間に存在し、膀胱を背側より圧排していた。この巨大嚢胞を穿刺すると、初めは赤褐色漿液性の液体を数10cc、続いて黄色透明漿液性の液体を500cc程吸引した（図2-b）。続いて、この巨大嚢胞に切開を加えスコープを挿入し、嚢胞内部を観察すると、内壁は平滑で、背側に子宮筋腫により裏打ちされた膨隆を認めた（図2-c）。一方、腹腔内所見は、ダグラス窩が閉鎖し、左卵巢嚢腫は、この巨大嚢胞に強固に癒着していた（図2-d）。術中所見では尿膜管嚢胞の可能性が否定できなかった。しかし、剥離により膀胱との境界を明らかにするには、癒着のため膀胱損傷のリスクがあると判断し、泌尿器医にコンサルトの上、膀胱と巨大嚢胞との剥離は一部にとどめ、3分の1程度尾側の嚢胞壁を残す形で核出した。続いて筋腫核出と左卵巢嚢腫核出を加え、核出した筋腫はモルセレーターで回収し、筋層を数層に単結節縫合した。手術時間は2時間13分、出血は少量であった。

摘出標本：巨大嚢胞の壁は薄く暗紫色で充実部を認めなかった（図3）。

病理所見：巨大嚢胞のHE弱拡大では、嚢胞壁は線維性で、内腔面に、異型に乏しい立方から扁平状の細胞が一層に配列し、壁内にはリンパ球浸潤を認めた（図4-a）。また、免疫染色で、中皮のマーカーであるcalretinin, CK5/6は陽性、リンパ管内皮で陽性となるD2-40は陰性であった（図4-b）。以上より、腹腔外に認めた巨大嚢胞は、mesothelial cystと診断した。他の術中摘出標本については、術前臨床診断と同じく平滑筋腫および内膜症性嚢胞の術後病理診断を得た。また、持続していた下腹部痛は術後消失した。

術後薬物療法を行わなかったが、mesothelial cystおよび内膜症性嚢胞について、現在に至る2年10ヶ月の間、再発を認めていない。

図2-a 巨大嚢胞と左卵巢嚢腫

図2-b 壁側腹膜より剥離した巨大嚢胞

図2-c 巨大嚢胞内部

図2-d 巨大嚢胞と左卵巢嚢腫との癒着

図3 摘出標本 巨大嚢胞壁 (ホルマリン固定後)

図4-a 巨大嚢胞壁の病理組織所見

弱拡大 (HE染色)

図4-b 巨大嚢胞壁の病理組織所見

強拡大 (HE、免疫染色)

考 察

mesothelial cystは、一般に骨盤内に多く¹⁾、腹腔外に発育することはまれである。本症例は、卵巢と強固に癒着し、内膜症を合併していたことから、稀な発育形態をとったものと考ええる。

臨床的にmesothelial cystは、性成熟期女性の腹腔内に発生することが多い^{1,6,7)}。主な症状は、持続する下腹部の不快感や疼痛で、既往手術・PID・内膜症に伴うことが多い^{1,6,8)}。mesothelial cystの成因については、腹膜の障害による体液の漏出および吸収の不均衡と、卵巢による腹水の産生が指摘されている。腹膜が障害を受けると、炎症により多量のフィブリノーゲンを含んだ浸出物が産生され、フィブリン塞栓となってリンパ管や毛細血管を閉塞させ、腹水の吸収が障害される⁹⁾と言う。また、同時におこる癒着により閉鎖腔が形成され、腹水が貯留すると考えられる⁵⁾。さらに、mesothelial cystが性成熟期女性に多いことについては、Koninckxらによる次の報告が参考になる。即ち、腹水産生について、正常月経周期女性では、卵胞期に著明に増加し、黄体早期をピークに減少を認めたが、閉経後萎縮内膜女性やピル内服により卵巢が不活化している女性では、腹水量はいずれも低下していた。これらの結果より、腹水量は、活動性の卵巢表面から分泌される腹水産生が大きく関与している¹⁰⁾と考えられる。上述に関連し、mesothelial cystは卵巢との癒着が

多い⁷⁾ことが指摘されており、画像所見において、正常卵巣に接して単房性または多房性の嚢胞を認める場合、mesothelial cystを診断する上での参考になる^{5,11)}と言う。本症例は、MRIで巨大嚢胞は左卵巣嚢腫に接し、また、術中所見で左卵巣嚢腫と強固に癒着しており、巨大嚢胞生成について、卵巣による腹水産生を介した関与を推測する。また本症例は、上腹部正中切開による胆嚢摘出術の既往があるものの上腹部に癒着を認めず、子宮・付属器中心に内膜症によると推測される癒着が存在しており、成因として既往手術の影響は低いと考えられた。mesothelial cystの病理学的特徴として、一層の扁平または立方形の悪性所見のない中皮細胞が嚢胞壁を覆っており、急性または慢性炎症細胞を伴う繊維性間質の増生を認める^{2,6)}ことが挙げられる。本症例でもこの所見に一致しており、免疫染色の結果もこれを支持していた。一方尿膜管嚢胞では、移行上皮または立方上皮に覆われている事が多く、円柱上皮や扁平上皮の報告もあるが、巨大嚢胞壁に上皮を認めなかったことから否定された。臨床的に、mesothelial cystが内膜症に合併することが多い⁶⁾と言われるが、病理学的観点からも内膜症が成因の一つとして、強く関与していることを示す報告^{2,8,12)}がある。本症例において、病理学的に巨大嚢胞壁内には内膜症の所見を認めなかったが、接していた左卵巣嚢腫は内膜症性嚢胞の診断であった。そもそも内膜症は、炎症と腹膜の癒着を伴い易く、性成熟期女性に多いという特徴があり、mesothelial cystの成因を考慮すれば、互いに合併し易いことは理解できる。加えて、腹膜欠損は、骨盤痛・月経困難などを主訴として診断的腹腔鏡手術を受けた女性患者の4-17%にみられ、そのうちの7-8割に内膜症が関与している^{13,14)}という報告があり、内膜症と腹膜欠損は関連が深い。以上の事から推測すると、本症例における稀な存在位置の説明として、内膜症による腹膜欠損部からmesothelial cystが腹壁下に発育し、尿膜管嚢胞に類似した形態をとったものと推測される。また、術前CA19-9とCA125の上昇を認めていたが、術後それぞれ46-68U/mlおよび26-40U/mlの値を推移し、2年経過後ほぼ正常範囲となった。mesothelial cystは一般に腫瘍マーカーが正常であり、術前に認めたCA19-9とCA125の上昇は、子宮内膜症の影響によるものと考えられる。

臨床所見では尿膜管嚢胞に特徴的とされる膀胱刺激症状・血尿・感染所見・CEA上昇¹⁵⁾は認めず、

MRI所見でも尿膜管嚢胞の特徴である膀胱頂部や臍と腫瘤の連続性^{15,16)}は認めなかった。今回、術中所見が尿膜管嚢胞に類似し判断に苦慮したが、腹腔鏡下手術で摘出し得た。mesothelial cystは卵巣腫瘍との鑑別が困難であり手術を選択しがちであるが、腹腔内の癒着のため手術の難易度が高く、摘出しても再発が多いことから、可能であれば保存的治療が望まれる。その成因の観点から卵巣機能抑制を目的とした、ホルモン療法⁵⁾やgonadotropin releasing hormone agonist (Gn-RHa)療法^{17,18)}を勧める報告がある。本症例では下腹部痛が持続し、大きさが大きいいため、診断を兼ねて手術を施行した。mesothelial cystは確定診断や治療のために手術が必要な時があるが、侵襲の少ない腹腔鏡下手術も選択肢の一つであると思われる。

本論文の要旨は、第10回近畿産婦人科内視鏡手術研究会(2010年2月 於大阪)、第50回日本産科婦人科内視鏡学会(2010年7月 於東京)、において発表した。

文 献

- 1) Weiss SW, Tavassoli FA: Multicystic mesothelioma. An analysis of pathologic findings and biologic behavior in 37 cases. *Am J Surg Pathol* 1988; 12(10): 737-46.
- 2) Groisman GM, Kerner H: Multicystic mesothelioma with endometriosis. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1992; 71(8): 642-4.
- 3) Soreide JA, Soreide K, Korner H, et al.: Benign peritoneal cystic mesothelioma. *World J Surg* 2006;30(4): 560-6.
- 4) Harper GB, Jr., Awbrey BJ, Thomas CG, et al.: Mesothelial cysts of the round ligament simulating inguinal hernia. Report of four cases and a review of the literature. *Am J Surg* 1986; 151(4): 515-7.
- 5) Hoffer FA, Kozakewich H, Colodny A, et al.: Peritoneal inclusion cysts: ovarian fluid in peritoneal adhesions. *Radiology* 1988; 169(1): 189-91.
- 6) Ross MJ, Welch WR, Scully RE.: Multilocular peritoneal inclusion cysts (so-called cystic mesotheliomas). *Cancer* 1989; 64(6): 1336-46.
- 7) McFadden DE, Clement PB.: Peritoneal inclusion cysts with mural mesothelial proliferation. A clinicopathological analysis of six cases. *Am J Surg Pathol* 1986; 10(12): 844-54.
- 8) Kerner H, Gaton E, Czernobilsky B.: Unusual ovarian, tubal and pelvic mesothelial inclusions in patients with endometriosis. *Histopathology* 1981; 5(3): 277-83.

- 9) Falk H.: Intraperitoneal cysts simulating ovarian cysts; diagnosis and treatment. *Obstet Gynecol* 1953; 1(183-187).
- 10) Koninckx PR, Renaer M, Brosens IA: Origin of peritoneal fluid in women; an ovarian exudation product. *Br J Obstet Gynecol* 1980; 87: 177-83.
- 11) Kim JS, Lee HJ, Woo SK, et al.: Peritoneal inclusion cysts and their relationship to the ovaries: evaluation with sonography. *Radiology* 1997; 204(2): 481-4.
- 12) Kurisu Y, Tsuji M, Shibayama Y, et al.: Multicystic mesothelioma caused by endometriosis: 2 case reports and review of the literature. *Int J Gynecol Pathol* 2011; 30(2): 163-6.
- 13) Chatman DL.: Pelvic peritoneal defects and endometriosis: Allen-Masters syndrome revisited. *Fertil Steril* 1981; 36(6): 751-56.
- 14) Chatman DL, Zbella EA.: Pelvic peritoneal defects and endometriosis: further observations. *Fertil Steril* 1986; 46(4): 711-4.
- 15) 太田晶一郎.: 尿膜管嚢胞の臨床的検討. *泌尿器外科* 1995; 8(9): 737-40
- 16) 菊池 勤.: MRIが診断に有用であった尿膜管嚢胞の2例. *臨床外科* 1997; 52(12): 1495-98.
- 17) Kurachi H, Murakami T, Maeda T, et al.: Value of gonadotropin-releasing hormone agonist in diagnosing peritoneal pseudocysts. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1996; 75(3): 294-7.
- 18) 岩田 卓.: Peritoneal inclusion cyst 嚢胞性卵巣腫瘍との鑑別. *産科と婦人科* 2007; 74(6): 676-83.