症例報告

多発子宮筋腫のため診断に苦慮した卵管間質部妊娠の一例

原三信病院 婦人科

貴島雅子、片岡恵子、松枝さやか、津田知輝

A diagnostically challenging case of interstitial ectopic pregnancy with multiple myomas

Masako Kijima, Keiko Kataoka, Sayaka Matsueda, Tomoteru Tsuda

Department of Gynecology, Harasanshin Hospital, Fukuoka

Abstract

Interstitial ectopic pregnancy is rare but the frequency is increasing. It is important to diagnose and treat at an early stage to avoid massive hemorrhage due to rupture. We report a diagnostically challenging case of interstitial ectopic pregnancy associated with multiple myomas. A 34-year-old woman (gravid 0) was referred to our hospital because of possible ectopic pregnancy. She was pregnant by artificial insemination on the 36th day of her last menstrual period; however, a gestational sac (GS) was not seen in the uterine cavity and the serum human chorionic gonadotropin (hCG) level was 2,993 mIU/ml. Laparoscopic surgery was performed the same day. Intraoperative examination revealed that the uterus was enlarged by multiple myomas; the bilateral adnexa were normal in appearance. Villi were not observed intraperitoneally. Intrauterine curettage was performed, but only decidual tissue was histopathologically confirmed. Serum hCG increased to 2,555 mIU/ml 10 days after surgery, but a GS was still not observed. Enhanced computed tomography was performed because the pregnancy status was uncertain. An enhanced cystic mass was observed, suggesting a right interstitial ectopic pregnancy. Repeat laparoscopic surgery was performed. After local injection of vasopressin into the right fundus, the uterine wall was incised and villus-like tissue was confirmed in the interstitial portion of the right tube. We removed villi as much as possible and sutured the myometrium. Villi were confirmed histopathologically. Serum hCG promptly decreased and the postoperative course was uneventful.

Key words: interstitial pregnancy, multiple myomas, laparoscopic surgery

緒 言

近年、典型的な異所性妊娠では、続発性無月経を伴う下腹部痛や不正性器出血などの症状、超音波断層法の所見、血中hCG値の上昇などにより比較的早期に診断がつく。着床部位が不明瞭な場合は頻回の経膈超音波断層法（transvaginal sonography：TVS）や血中hCG値の推移、子宮内容除去術や診断的腹腔鏡などを行いながら診療を進めることもある。今回、異所性妊娠を強く疑い頻回の診察や子宮内容除去術および診断的腹腔鏡を行うも、多発子宮筋腫のため着床部位の特定に至らず診断に苦慮した卵管間質部妊娠の症例を

経験したので報告する。

症 例

34歳 未経妊
156cm 81.5kg BMI33.5
既往歴：特記事項なし
月経歴：初経11歳 28-30日型 過多月経なし
月経困難なし
現病歴：24歳の頃より月経不順のため低用量ピルを内服していた。25歳時に結婚し低用量ピルの内服を中止したが、1年半の不妊期間あり当科を受診し、内診およびTVSで異常を認めなかった。その後受診なし。32歳時の健診で初めて子宮底部

図1 初診時の経膣超音波断層法
子宮内にGSを認めず (a)、また両側付属器領域に腫瘍を認めなかった (b)。

右側に4.5cm大の筋層内筋腫を指摘されたが、症状はなく経過観察となっていた。34歳時に挙児希望のため前医を受診した。多嚢胞性卵巣症候群による排卵障害、男性因子による不妊症の診断で、クロミフェン療法下に人工授精 (artificial insemination with husband's semen : AIH) を開始された。4回目のAIHを施行し (右卵巣に成熟卵胞あり)、妊娠5週2日目に妊娠反応陽性となったが、子宮内に胎嚢 (gestational sac: GS) を認めなかった (図1)。2日後の再検でもGSを認めないため、妊娠5週4日目に異所性妊娠を疑われ当科紹介受診。初診時、下腹部痛はないが少量の褐色帯下を認めた。TVSで子宮内膜は13mmで子宮内にGSを認めず、両側付属器の腫大はなかった。血中hCG値は2993mIU/mlと高値であった。AIHによる妊娠であり、妊娠週数は確かであるため、異所性妊娠を強く疑った。数日の待機は可能であったかもしれないが、異所性妊娠の破裂は妊娠5-9週の妊娠初期でも起こりうることであり^{1,2)}、異所性妊娠の可能性が憂慮されること、妊娠初期でも破裂のリスクを有することを説明した。次回妊娠のことを考慮されており、早期ではあったが、同日腹腔鏡手術を行った。子宮底部右側に手拳大、底部左側の卵管付着部位に小鶏卵大、その間に母指頭大の筋層内筋腫を認め、両側付属器は正常外観であった (図2)。腹腔内を十分に検索したが、着床部位の特定はできなかったため、不全流産を疑い子宮内容除去術を行った。術後3日目の血中hCG値は1810.7mIU/mlと低下傾向であり一旦退院したが、病理組織診断は脱落膜組織のみであった。術後10日目の血中hCG値は2555.4mIU/mlと再び上昇していたが、TVSで子宮内にGSを認めず着床部位は不明であった。緊急のMRI検査は難しいため、妊娠6週5日目に造

影CT検査を施行したところ、右卵管間質部に辺縁が強く増強される22mm大の嚢胞性構造を認めた (図3)。右卵管間質部妊娠を強く疑い、再度腹腔鏡手術を施行した。臍部に10mmのカメラポート、下腹部左右と臍高左側に5mmトロッカーを留置し、パラレル法で行った。両側付属器は正常外観で、腹腔内に出血を認めなかった。術前の造影CT検査で子宮底部右側の筋腫近傍に増強される領域を指摘されていたため、子宮底部右側の筋腫周囲にバソプレシンを局注すると青紫色に変化した。同部位をモノポーラで切開したところ、右卵管内腔に到達し絨毛様組織を確認した。同部位の組織を可能な限り摘出し、その周囲をバイポーラで焼灼した。1-0吸収糸で筋層と漿膜をZ縫合で1層に縫合閉鎖し、癒着防止材を貼付して手術を終了した (図4)。術後診断は右卵管間質部妊娠で、術中出血量は少量であった。病理組織検査で絨毛組織を認め、術後の血中hCG値は速やかに低下し、再手術後9日目には陰性となった。

考 察

卵管間質部妊娠は卵管妊娠の2-4%程度と稀である³⁾。子宮筋層からの豊富な血流により破裂時には大量出血を引き起こし、死亡率は2-2.5%と他部位の異所性妊娠と比して高い³⁾。診断は一般的に続発性無月経、下腹部痛、不正性器出血などの症状やTVSの所見、血中hCG値の上昇などにより総合的に行う。リスクファクターとしては、異所性妊娠の既往、卵管切除術の既往、体外受精を含む高次生殖医療、骨盤腹膜炎の既往、子宮奇形などが挙げられる^{3,4)}。卵管間質部妊娠のTVSの所見として、①子宮内腔にGSがない、②GSが子宮内腔より1cm以上離れて認められる、③GSを薄い子宮筋層が覆っている、という3つの項目

図2 初回手術時。子宮底部右側に手拳大、底部左側の卵管附着部位に小鶏卵大、その間に母指頭大の子宮筋腫を認めた (a)。両側付属器は正常外観であった (b,c)。

図3 造影CT早期相 (a: 水平断 b: 冠状断)
右卵管間質部に辺縁が強く増強される22mm大の嚢胞性構造を認めた (→)。
bの矢印 (→) は内膜、(→) は筋腫を示す。

を満たす場合に間質部妊娠が示唆されるとの報告がある^{5,6)}。また、interstitial line signともいわれる、GSと子宮内腔との間のエコーラインの存在は卵管間質部妊娠において感度、特異度とも高いと報告されている^{4,7)}。異所性妊娠の診断にはTVSが有用ではあるが、診断がつかない場合や着床部位が不明である場合にはMRI検査や造影CT検査を参考にすることもある^{8,9)} 本症例では多発子宮

筋腫のため、TVSでは付属器周囲の観察が困難であったため、造影CTを施行している。一般的にはTVSで診断困難である場合にはMRI検査が施行されることが多く、造影CT検査が施行されている報告では、下腹部痛の精査時に行った造影CT検査で偶発的に異所性妊娠が指摘されている報告が多い^{10,11)}。MRI検査や造影CT検査では、胎嚢は厚い壁に囲まれた嚢胞様構造として認められ

図4 2回目手術時。子宮底部右側の子宮筋腫近傍の卵管間質部に、青紫色にやや腫脹した妊娠部位と思われる所見を認める (a)。右卵管間質部の絨毛組織を可能な限り摘出した (b)。子宮卵管角部の切開部を吸収糸で縫合した (c)。

る。MRI検査ではより詳細に着床部位を同定することが可能である。造影CT検査では嚢胞周囲が強く造影され、TVSのカラードップラーでみられるring of fire signに相関するような所見がみられる^{9,10-12)}。本症例でも周囲を強く造影される嚢胞構造を確認でき、間質部妊娠に合致する所見と考えられた。強く造影される付属器腫瘍は、付属器膿瘍や卵巣腫瘍、黄体嚢胞との鑑別を要するが、増強の程度や嚢胞の大きさにより鑑別は比較的容易である¹³⁾。放射線被曝や造影剤の使用の問題はあるが、CT検査は早急に利用できる画像診断法であり、出血点の同定が可能であり、また虫垂炎など他の急性腹症を呈する疾患との鑑別もできるため、破裂が疑われる場合や緊急時には有用である¹²⁾。Tulandiらは、卵管間質部妊娠32症例中で破裂した14例はすべて12週未満であったと報告している³⁾が、妊娠6-8週での破裂の報告も散見され^{5,12,14,15)}、卵管間質部妊娠の破裂は12週未満の妊娠初期のいつでも起こり得ることである⁸⁾。診断の遅れが致命的となるため、診断が困難な場合にはMRI検査や造影CT検査も選択肢の1つとなる¹⁶⁾。

卵管間質部妊娠の治療については、以前は診断の遅れにより開腹による子宮全摘出や子宮卵管角楔状切除が行われてきたが、近年は早期発見が可能となったことや腹腔鏡手術技術の向上により、腹腔鏡下に子宮卵管角切除や卵管間質部切開が行われるようになってきた。Tulandiらは、卵管間質部妊娠32症例中、11症例（切除8例、切開3例）が腹腔鏡下に治療され、子宮卵管角切除の1例を除き追加治療を行わずに治療されたと報告している³⁾。Lauらのレビューでは、腹腔鏡手術22症例（切除14例、切開7例含む）ですべて成功したと報告している¹⁷⁾。本症例では腹腔鏡下子宮卵管角楔状切除を予定していたが、術中所見で着床部位が子宮筋腫近傍の卵管間質部であったこと、また術中に卵管間質部線状切開を行ったところ絨毛組織を摘出できたことより、着床部位周囲の子宮卵管角部の切除は行わなかった。バソプレシンの局注を行ったうえで、腹腔鏡下卵管間質部切開を施行し、術中出血は少量でトラブルなく終了した。組織学的に摘出組織内に絨毛組織を確認し、また術後の血中hCG値も順調に低下しており、術後経過は良好であった。

卵管間質部妊娠治療後の妊娠では、妊娠・分娩中の子宮破裂の報告もみられるため、注意深く観察する必要がある¹⁸⁻²⁰⁾。保存的治療後に菲薄化した筋層の部分で破裂したのではないかの推測もあり、外科的に保存的治療を行う場合は、子宮角部の筋層を適切に縫合することが重要であるとされている¹⁷⁾。GSの直径3.5cm以下では卵管切開、4cm以上では切除を行うとの報告もある²¹⁾が、未破裂でGSが小さなものであれば、バソプレシンの使用や筋層の適切な縫合により、筋腫合併例においても腹腔鏡による治療は安全に施行可能であると考えられる。Agdiらは卵管間質部妊娠後の分娩中の子宮破裂の回避のため、帝王切開による分娩を勧めており¹⁸⁾、当科でも同様に対応している。卵管間質部妊娠治療後の妊娠・分娩中の破裂のリスクは明らかではなく¹⁷⁾、今後も分娩方法に関しては更なる検討が必要である。

結 語

生殖医療の発達により、体外受精、高齢出産が増加しており、今回のように子宮筋腫を合併した異所性妊娠は今後も増加していくと考えられる。異所性妊娠においては診断の遅れが生命の危険を招くこともあるため、着床部位の特定が困難である場合には、MRI検査を考慮すべきであり、また緊急時には造影CT検査も許容され则认为る。また、筋腫を合併した卵管間質部妊娠症例においても、バソプレシンの使用や筋層の適切な縫合により、腹腔鏡下の子宮卵管角切除や卵管切開は選択肢の1つとなる。

本論文の要旨は第11回九州産婦人科内視鏡手術研究会において発表した。

文 献

- 1) Malatyalioglu E, et al. : CA-125 levels in ruptured and unruptured tubal ectopic pregnancies. J Obstet Gynecol Res. 2006 ; 32 (4) : 422-427.
- 2) Saxon D, et al. : A study of ruptured tubal ectopic pregnancy. Obstet Gynecol. 1997 ; 90(1) : 46-49.
- 3) Tulandi T, et al. : Interstitial pregnancy: Results Generated From the Society of Reproductive Surgeons Registry. Obstet Gynecol. 2004 ; 103 (1) : 47-50.
- 4) R Rastogi, et al. : Interstitial ectopic pregnancy: A rare and difficult clinicosonographic diagnosis. J Hum Reprod Sci. 2008 ; 1 (2) : 81-82.
- 5) 河北貴子他：当院で経験した卵管間質部妊娠5症例. Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal. 2012 March ; 17 (1) : 21-25.
- 6) Timor-Tritsch IE, et al. : Sonographic evolution of corneal pregnancies treated without surgery. Obstet Gynecol. 1992 ; 79 : 1044-1049.
- 7) Ackerman TE, et al. : Interstitial line : Sonographic finding in interstitial (cornual) ectopic pregnancy. Radiology. 1993 ; 189 : 83-87.
- 8) Botros R, et al. : Challenges in the diagnosis and management of interstitial and cornual ectopic pregnancies. Middle East Fertility Society Journal. 2013 ; 18 : 235-240.
- 9) Filhaestre M, et al. : Interstitial pregnancy : role of MRI. Eur Radiol. 2005 ; 15 : 93-95.
- 10) Kao LY, et al. : Beyond Ultrasound : CT and MRI of Ectopic Pregnancy. American Journal of Roentgenology. 2014 ; 202 : 904-911.
- 11) Pham H, et al. : Adnexal ring of ectopic pregnancy detected by contrast-enhanced CT. Abdom Imaging. 2007 ; 32 (1) : 56-58.
- 12) Miciej M, et al. : Ruptured ectopic pregnancy diagnosed with computed tomography. Pol J Radiol. 2010 ; 75 (4) : 44-46.
- 13) Shin BS, et al. : Incidental Detection of Interstitial Pregnancy on CT Imaging. Korean J Radiol. 2010 ; 11 (1) : 123-125.
- 14) Savvidou MD, et al. : Conservative surgical management of ruptured interstitial pregnancy. Acta Obstet Gynecol Scand. 2006 ; 85 (5) : 629-631.
- 15) 濱地勝弘他：当科で治療した卵管間質部妊娠12症例の検討. 日本産婦人科内視鏡学会雑誌. 2006 ; 22 (2) : 403-407.
- 16) 戸澤晃子他：卵管間質部妊娠8例における腹腔鏡下卵管角切除術の検討. 日本産婦人科内視鏡学会雑誌. 2016 ; 31 (2) : 423-428.
- 17) Lau S, et al. : Conservative medical and surgical management of interstitial ectopic pregnancy. Fertility and Sterility. 1999 ; 72 (2) : 207-215.
- 18) Agdi M, Tulandi T. : Surgical treatment of ectopic pregnancy. Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol. 2009 ; 23 (4) : 519-527.
- 19) Weissman A, et al. : Uterine rupture following conservative surgery for interstitial pregnancy. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol. 1992 ; 44 : 237-239.
- 20) Downey GP, et al. : Spontaneous uterine rupture during subsequent pregnancy following non-excision of an interstitial ectopic gestation. Br J Obstet Gynecol. 1994 ; 101 : 162-163.
- 21) Fraj R, et al. : Management of cornual(interstitial) pregnancy. The Obstetrician & Gynaecologist. 2007 ; 9 : 249-255.

投稿日：2016年12月7日

採択日：2017年3月21日