症例報告

術前に予測して鏡視下に摘出しえた、 ダグラス窩に見られた卵巣外成熟嚢胞性奇形腫の一例

公立豊岡病院組合立豊岡病院産婦人科¹⁾、大津市民病院産婦人科²⁾
小椋淳平¹⁾、山ノ井康二¹⁾、平山貴裕²⁾、安本晃司¹⁾、杉並 興¹⁾

A case of preoperatively-predicted extragonadal mature cystic teratoma in the pouch of Douglas resected via laparoscopic surgery.

Jumpei Ogura¹⁾, Koji Yamanoi¹⁾, Takahiro Hirayama²⁾, Koji Yasumoto¹⁾, Koh Suginami¹⁾

Department of Obstetrics and Gynecology, Toyooka Public Hospital¹⁾,

Department of Obstetrics and Gynecology, Otsu City Hospital²⁾

Abstract

Mature cystic teratomas derived from extragonadal lesions are rare. We report a case of extragonadal mature cystic teratoma (EMCT) in the pouch of Douglas (POD), which was predicted preoperatively and successfully resected by performing laparoscopic surgery. A 35-year-old woman was incidentally diagnosed with a mass measuring 6 cm in diameter in the right pelvis on ultrasonographic examination. Magnetic resonance imaging (MRI) findings were suggestive of mature cystic teratoma. Both normal ovaries were found adjacent to the mass. We considered the possibility of EMCT, and performed laparoscopic surgery.

Intraoperatively, the cyst was found in the POD and both ovaries appeared normal. There were violin string-like adhesions between the cyst wall and the back of the uterus, right ovary, and serosa of the rectum. We dissected the adhesions with the rectum with the help of a gastroenterological surgeon, and dissected the other adhesions easily ourselves. The patient had an uneventful postoperative course and was discharged on the fourth post-operative day. Pathological examination of the resected mass revealed the mass to be EMCT.

Only approximately 20 cases of EMCTs in POD have been reported till date. There are several hypotheses to explain their etiopathogenesis. We hypothesize that auto-amputation could be the mechanism that resulted in EMCT in this case. Though EMCTs are rare, we should consider performing detailed preoperative evaluations with EMCT as a differential diagnosis. Subsequently, we can plan an appropriate surgical approach beforehand, and perform laparoscopic surgery safely.

Key words: Extragonadal mature cystic teratoma, pouch of Douglas, laparoscopic surgery

緒 言

胚細胞性腫瘍の一つである成熟嚢胞性奇形腫は、卵巣に好発することが知られており、卵巣腫瘍の約20-25%を占める。稀に卵巣外に発生する成熟嚢胞性奇形腫の例もあるが、多くは卵巣に発生し、卵巣以外に発生する成熟嚢胞性奇形腫は0.4%程度を占めるのみで極めて珍しい¹⁾。そのため、特に骨盤内に腫瘍が存在する場合、術前は頻度が圧倒的に多い卵巣原発と誤認し、術中に卵

巣外成熟嚢胞性奇形腫と判明する事が度々報告されている²⁻¹¹⁾。今回我々はダグラス窩に認められた成熟嚢胞性奇形腫について、術前の詳細な検討から卵巣外発生の成熟嚢胞性奇形腫を疑い、他科と事前に連携して安全に鏡視下に腫瘍を摘出できた症例を経験したため、報告する。

症 例

症例は35歳、3妊3産。

初経12歳で、月経周期は27日で整、6日間持続、

月経困難症は見られなかった。

既往歴、家族歴に特記事項は無かった。

現病歴：経陰分娩後、1ヶ月健診にて施行した経陰超音波検査にて、子宮背側右側に、5.7 cm×6.5 cm×6.2 cm大の腫瘤を偶発的に認めた。超音波所見にて、腫瘤は単房性で充実性壁在結節は明らかでなく、内部にhair ball様の所見を認めた。また正常左卵巢は描出できたものの右卵巢は描出されなかったため、腫瘍は右卵巢由来のものであろうと、この時点では推測した。その後、MRI検査を施行した。その画像において、腫瘍は境界明瞭で辺縁整、T1強調画像、T2強調画像で共に高信号を呈しており（Figure 1A, B）、脂肪抑制画像にて抑制されていた（Figure 1C）。充実成分や壁在結節はみとめられなかった（Figure 1）。また左右卵巢を詳細に検討したところ、腫瘍とは別に、正常構造の左右卵巢を確認する事ができた（Figure 1A）。腫瘍マーカーはCA125 :15.5 U/ml, CA19-9 : 8.1 U/ml, SCC : 1.1 ng/mlと上昇は認めなかった。

以上より、腫瘍は成熟嚢胞性奇形腫で、左右卵

巣が確認できた事から、稀であるが卵巢外成熟嚢胞性奇形腫を術前に最も疑った。腫瘍は6 cmを超すものであり、無症状ではあるが手術適応にあると判断した。卵巢外が発生母地である場合、周囲腸管との癒着が考えられたため、消化管外科に連携を依頼した上で、腹腔鏡下腫瘍切除術を施行することとした。

全身麻酔、碎石位、気腹法にて手術を行った。臍にオープン法にて12 mmトロッカーを挿入、右下腹部に鏡視下に11 mmトロッカーを挿入、下腹部正中と左下腹部に5 mmトロッカーを挿入した。また子宮内にマニピュレーターを挿入して、子宮の牽引を行った。

腹腔内を観察したところ、右卵巢、卵管とも概ね正常で、左卵巢は萎縮しているように見えた。腫瘍は骨盤腹腔内にあり、子宮右背側に位置していた。右仙骨子宮靱帯と最も強く癒着していたが、鏡視下に十分観察したものの栄養血管は明らかでなかった。その他右卵巢・子宮背側との間に疎な癒着があり、直腸漿膜との間には膜状に癒着が見られた。そして左卵管采と細い索状物でつながっ

A

B

C

Figure 1：術前MRI水平断画像。＊ 骨盤内腫瘍

A: T2強調画像。左右卵巢構造が確認できる。

B: T1強調画像。腫瘍腹側はT1高信号を呈する。

C: T1強調脂肪抑制画像。腫瘍内のT1高信号域に、脂肪抑制効果が顕著である。

ていた (Figure 2A)。

子宮、卵巣と腫瘍の癒着は軽度で容易に剥離できた。しかし直腸漿膜と腫瘍の癒着が強固であったため、直腸漿膜原発の成熟嚢胞性奇形腫の可能性も考えられた。当院消化管外科医師の指導の下に腫瘍と直腸漿膜の癒着剥離を行った。鏡視下に視野を拡大して慎重に検討したところ、腫瘍は直腸漿膜の切開が必要ない位置で癒着していることが分かった。モノポーラーやシーリングデバイスを用いて慎重に腫瘍と直腸漿膜を全周性に剥離した (Figure 2B)。その後腫瘍内容を吸引し (160 ml、乳白色泥状)、最も強く癒着していた右仙骨子宮靱帯と腫瘍との間を尿管に留意して慎重に剥離し、腫瘍を摘出した (Figure 2C)。

標本を回収袋に入れて臍トロッカー部位より摘出した。腹腔内を十分に洗浄して奇形腫成分の遺残が無い事と、出血が無い事を確認して、手術を終了した。手術時間は2時間17分、出血量は少量であった。術後経過は良好で、術後4日目に退院となった。

腫瘍内腔は平滑で5 mm大の突起が認められ (Figure 3A)、内容物には毛髪を認めた (Figure 3B)。病理学的検査にて、嚢胞内腔壁は異型のない角化型重層扁平上皮で構成されており、その他皮脂腺や毛根も認められた (Figure 3C)。以上より、成熟嚢胞性奇形腫と診断した。一方、卵巣

間質成分は全く認められず、卵巣外成熟嚢胞性奇形腫と考えられた。

以後外来にて経過観察としているが、術後1年の状態で、再発を認めていない。

考 察

卵巣成熟嚢胞性奇形腫は全卵巣腫瘍の20～25 %程度を占める良性腫瘍で、日常遭遇する頻度の比較的高い卵巣腫瘍の1つである。成熟嚢胞性奇形腫自体は後腹膜腔、大網、仙骨周囲、精巣、縦隔など、身体の中、傍正中に存在する臓器や構造に発症する事例もある事が知られているが、多くは卵巣に発生し、卵巣以外に発生する成熟嚢胞性奇形腫は0.4 %程度を占めるのみである¹⁾。中でも本症例のように、骨盤腹腔内、特にダグラス窩に認められる卵巣外成熟嚢胞性奇形腫は稀であり、我々が調べたところでは20例程度の報告しかされていない²⁾。

卵巣外成熟嚢胞性奇形腫の発生機序としてa) 胚芽期に迷入した生殖細胞から発生したとする説^{3,8)}、b) 副卵巣から発生したとする説^{4,9)}、c) 卵巣成熟嚢胞性奇形腫が自然脱落后異所性に生着したとする説^{2,5,6,10,11)}、が提唱されている (Table1)。

本症例において、腫瘍は腹腔内に存在し、右卵巣との癒着は軽度であった一方、左卵管と紐状に結合組織がつながっていた。摘出した腫瘍の病理学

A

B

C

Figure 2: 術中所見

- A: 腫瘍と子宮、右卵巣との癒着、左付属器との紐状構造物が見られた。左卵巣は萎縮していた。
B: 直腸漿膜と腫瘍に癒着あり。慎重に剥離を行った。
C: 腫瘍と右仙骨子宮靱帯に、最も強い癒着が見られた。

A

B

C

Figure 3 病理学的所見

A: 腫瘍切開面、肉眼的所見。単房性でRokitansky結節が見られた

B: 腫瘍内溶液。乳白色で脂肪成分、毛髪成分が含まれていた。

C: 病理組織学所見。40倍拡大視野。角化型重層扁平上皮を認める。卵巣間質は見られず。

Table 1: ダグラス窩に認めた卵巣外成熟嚢胞性奇形腫の報告

	年齢	術前診断	術中卵巣所見	病理学的所見	術式	推定発生機序
Takeda ら ⁸⁾	49	卵巣腫瘍	異常無し	成熟嚢胞性奇形腫 卵巣組織記載無し	腹腔鏡下切除	胎芽期迷入細胞・副卵巣からの発生
Kobayashi ら ⁹⁾	61	卵巣腫瘍	異常無し	成熟嚢胞性奇形腫 卵巣組織記載無し	開腹術	
Kakuda M ら ²⁾	41	卵巣腫瘍	萎縮	成熟嚢胞性奇形腫 卵巣間質あり	腹腔鏡下切除	自然脱落后異所性生着
Kusaka ら ⁵⁾	24	卵巣腫瘍	左卵巣無し	成熟嚢胞性奇形腫 卵巣間質あり	腹腔鏡下切除	
Koo YJ ら ¹⁰⁾	34	卵巣腫瘍	変形	記載無し	腹腔鏡下切除	
Peitsidou ら ¹¹⁾	33	診断無し	右卵巣無し	成熟嚢胞性奇形腫 白体あり	開腹術	
本症例	35	腹腔内腫瘍	左卵巣萎縮	卵巣間質無し	腹腔鏡下切除	

検査にて卵巢実質組織が見られなかったが、左卵巢は右と比して萎縮している所見であった。そのため、迷入した生殖細胞から発生した、あるいは副卵巢由来とは考えがたく、卵巢成熟嚢胞性奇形腫が自然脱落し、異所性に生着したものと考えられる。

成熟嚢胞性奇形腫の多くは、術前に主にMRIによる画像検査の結果、診断される事が多い。多くの場合含有されている脂肪成分が、脂肪抑制T1強調画像を用いることで明らかとなり、診断の一助となる。今回も脂肪抑制T1強調画像で、脂肪成分の存在が明らかとなり、成熟嚢胞性奇形腫の術前診断をつけることができた。成熟嚢胞性奇形腫は、良性が疑われていても、捻転や破裂のリスクが考えられる場合は手術適応となり、今日では腹腔鏡下手術が選択される事が多い。

成熟嚢胞性奇形腫の多くは卵巢原発であるが、これまで述べたように、稀ながら卵巢外に発生する事もある。大網に発生した成熟嚢胞性奇形腫を、当初卵巢原発と術前診断して手術加療を行った報告もある^{2,11)}。本症例において我々は、当初経膈超音波にて正常左卵巢が描出された一方、右卵巢が描出されず、腫瘍も右側に位置していた事から、右卵巢原発腫瘍と考えた。しかしその後施行したMRI検査にて右卵巢も確認でき、稀な病態ではあるが、骨盤腹腔内に存在する、卵巢外成熟嚢胞性奇形腫の可能性を術前に想定する事ができた。そして、術中に判明した直腸漿膜との癒着については、消化器外科医師との協力のもと、鏡視下に視野を拡大して詳細に癒着部位を観察する事で、安全に癒着剥離を施行する事ができた。

鏡視下に腫瘍の切除を行う場合、発生部位が卵巢と異なる場合は特に、トロッカー位置や手術方式の変更が必要となりうる。そのため、ともすれば卵巢原発であろうと詳細な検討が省かれる可能性のある発生部位について、十分吟味する事が肝要である。本症例では事前に卵巢外発生の可能性を考えていたため、消化器外科との連携をスムーズに行う事ができた。例えば大血管や尿管に近接すると判断される場合は、心臓血管外科や泌尿器科に事前に連携を求める事により、より安全な鏡視下腫瘍切除術を行う事ができるであろう。

結 語

術前に発生部位について詳細に検討を行い、その結果卵巢外成熟嚢胞性奇形腫の可能性を考えて、鏡視下に腫瘍を摘出しえた1例を経験した。

卵巢外成熟嚢胞性奇形腫は稀ではあるが、その可能性を排除する事無く、手術に望む前に発生部位を詳細に検討する事は非常に重要である。そして卵巢外が発生母地と考えられる場合は、必要に応じて他科との連携を行う事で、安全な鏡視下手術が遂行できると考える。

本論文の要旨は第57回日本産婦人科内視鏡学会において発表した。

本論文に関わる著者の利益相反；すべての著者は開示すべき利益相反はない。

文 献

- 1) Yoshida Atsushi, et al. : Case of mature cystic teratoma of the greater omentum misdiagnosed as ovarian cyst. J Obstet Gynaecol Res 2005 ; 31 : 399-403.
- 2) Kakuda Mamoru, et al. : A case of extragonadal teratoma in the pouch of Douglas and literature review. J MINIM INVAS GYNL 2015 ; 22 : 1311-1317.
- 3) Fujimoto Toyoaki, Yukihiko Miyayama, and Masatoshi Fuyuta. The origin, migration and fine morphology of human primordial germ cells. Anat Rec 1977 ; 188 : 315-329.
- 4) Wharton Lawrence R. Two cases of supernumerary ovary and one of accessory ovary, with an analysis of previously reported cases. Am J Obstet Gynecol 1959 ; 78 : 1101-1119.
- 5) Kusaka Masumi, et al. : Ectopic ovary: A case of autoamputated ovary with mature cystic teratoma into the cul-de-sac. J Obstet Gynaecol Res 2007 ; 33 : 368-370.
- 6) Ushakov Fedor B., et al. : Parasitic ovarian dermoid tumor of the omentum-A review of the literature and report of two new cases. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 1998 ; 81 : 77-82.
- 7) 村上 幸祐, et al. : 腹腔鏡手術により摘出し得た大網成熟嚢胞性奇形腫の1例. 日本産科婦人科内視鏡学会雑誌 2016 ; 31 : 439-443.
- 8) Takeda Akihiro, et al. : Early abdominal pregnancy complicated by parasitic dermoid cyst: diagnosis by diffusion-weighted magnetic resonance imaging and management by laparoendoscopic single-site surgery. : J MINIM INVAS GYNL 2012 ; 19 : 647-650.
- 9) Kobayashi Y., K. Kiguchi, and B. Ishizuka. : Mature cystic teratoma of the pouch of Douglas containing multiple mobile spherules. International Journal of Gynecology & Obstetrics 2006 ; 92 : 81-82.
- 10) Koo Yu-Jin, et al. : Mature cystic teratoma of the

uterosacral ligament successfully treated with laparoendoscopic single-site surgery. : Taiwanese Journal of Obstetrics and Gynecology 2012 ; 51 : 86-88.

- 11) Peitsidou Aikaterini, et al. : Diagnosis of an autoamputated ovary with dermoid cyst during a Cesarean section. : Fertil Steril 2009 ; 91 : 1294-e9.

投稿日 : 2017年 9 月18日

採択日 : 2017年10月24日