症例報告

術後に稀な骨盤内嚢胞性疾患と診断された2例

NTT西日本松山病院 産婦人科¹⁾、愛媛大学大学院医学系研究科 地域小児周産期学講座²⁾、
愛媛大学大学院医学系研究科 分子病理学³⁾

甲谷秀子¹⁾、松原圭一²⁾、金子久恵¹⁾、田坂美恵¹⁾、北澤莊平³⁾

Two cases of rare pelvic cyst diagnosed after laparoscopic cystectomy

Hideko Kotani¹⁾, Keiichi Matsubara²⁾, Hisae Kaneko¹⁾, Mie Tasaka¹⁾, Sohei Kitazawa³⁾

Department of Obstetrics and Gynecology, NTT West Japan Matsuyama Hospital¹⁾,

Department of Obstetrics and Gynecology, Ehime University School of Medicine²⁾

Department of Molecular Pathology, Ehime University School of Medicine³⁾

Abstract

Objective: We encountered two cases of rare pelvic cysts diagnosed after laparoscopic cystectomy.

Case report: Case 1 was of a 73-year-old woman with a cyst measuring 4.7 cm, detected by transvaginal ultrasonography and MRI. We diagnosed a potential ovarian cyst and conducted laparoscopic surgery, finding the cyst in the mesenteric ligament and resecting it. Histopathologically, the cystic wall consisted of fibrous tissue lacking epithelium. Immunohistochemical analysis showed positive staining for calretinin, leading to diagnosis of a mesenteric pseudocyst. Case 2 was of a 57-year-old woman with a 14.3 cm serous cyst in her pelvis, detected by abdominal MRI. On the basis of a preoperative diagnosis of an ovarian cyst, we conducted laparoscopic surgery, finding a retroperitoneal cyst and resecting it. Histopathologically, the cyst was lined by benign papillary epithelium. Immunohistochemical analysis showed positive staining for estrogen receptors, progesterone receptors, and CA 125. It was diagnosed as a retroperitoneal Müllerian cyst.

Conclusion: It is important to consider the possibility of a rare pelvic cyst whenever a patient is diagnosed with an ovarian cyst.

Key words: mesenteric pseudocyst, retroperitoneal Müllerian cyst, rare pelvic cyst

諸 言

腸間膜嚢胞や後腹膜腫瘍は稀な疾患で、術前診断が困難であることが多い。今回我々は、術前には卵巣嚢腫と診断したが、術中、術後に仮性腸間膜嚢胞および後腹膜嚢胞と診断された症例を経験したので報告する。

症 例

症例1：73歳 2妊2産 閉経53歳

主訴：黄色帯下

既往歴：27歳 遺残胎盤除去手術

現病歴：3か月前から帯下増加を認めたため当科を受診した。経膈超音波検査でダグラス窩に直径

約5 cm大の単純嚢胞を認め、卵巣嚢腫を疑った。

血液一般検査：異常なし

血液生化学検査：異常なし

腫瘍マーカー：CA19-9 3.38 U/ml, CEA 1.5 ng/mlと正常であった。

細胞診：頸部 NILM, 体部 陰性

骨盤MRI：子宮背側やや右方の頭側に直径5.2 cmのT1 low・T2 highである境界明瞭な単房性嚢胞を認め、充実部は認めなかった。また両側卵巣は描出されなかった。

以上の所見より、良性の右卵巣嚢腫と診断し、1年間外来で経過観察するも縮小せず、本人の希望もあり手術を行うこととした。

手術所見：嚢胞は子宮背部頭側に存在し、大きさ

は鶏卵大、表面は平滑でS状結腸間膜と連続していた。両側卵巣はやや委縮するも腫瘍とは独立して正常に存在していた。以上より腸間膜嚢胞と術中診断し、外科医の立会い下で、嚢胞切除術を施行した。周囲に癒着はなく、比較的容易に摘出できた。嚢胞壁は薄く均一で内溶液は淡黄色・透明、漿液性であった。

病理組織検査：HE染色にて単層～三層で細胞質が淡いeosin陽性の中皮細胞を認め、その下層は脂肪に富み、薄い膠原繊維から構成されていた。免疫染色では中皮マーカーであるcalretinin陽性であることから、中皮由来の嚢胞性病変であると診断した。

最終診断：手術所見および病理組織検査より、仮性腸間膜嚢胞と最終診断した。

術後経過：術後は順調に経過し、術後7日目に退院した。

症例2：57歳 0妊0産 閉経50歳

主訴：巨大骨盤腫瘍

既往歴：特になし

現病歴：外陰部搔痒感にて前医を受診。超音波検査で大きな骨盤内腫瘍を指摘され、精査目的に当科紹介受診となった。前医での治療にて搔痒感は消失していた。経膈超音波検査で直径約15 cm大の単純嚢胞を認め、卵巣嚢腫を疑った。

図1-a

図1-b

図1 骨盤MRI画像（症例1） 1-a axial T1強調画像 1-b axial T2強調画像
子宮背側やや右頭側に直径5.2 cmのT1 low・T2 highである境界明瞭な単房性嚢胞を認めた。両側卵巣は描出されなかった。

図2-a

図2-b

図2 腹腔鏡所見（症例1）
図2-a 子宮背部の嚢胞は子宮・卵巣と連続していなかった。
図2-b 嚢胞はS状結腸間膜と連続していた。

血液一般検査：異常なし

血液生化学検査：異常なし

腫瘍マーカー：CA19-9 5.11 U/ml, CEA 1.3 ng/ml, CA125 14.7 U/mlと正常であった。

骨盤MRI：下腹部全体を占拠する直径14×10×9 cmのT1 low・T2 highである境界明瞭な単房性嚢胞を認めた。充実部は認めなかった。また両側卵巢は描出できなかった。

以上の所見より卵巢嚢腫と診断し、腹腔鏡手術を行うこととした。

手術所見：嚢胞は骨盤内をほぼ占拠するように存在し、表面は腹膜で覆われ、卵巢や腸管との連続性は認めなかった。両側卵巢は視診上正常であった。以上より後腹膜嚢腫と術中診断し、覆っていた広間膜を切開して嚢腫に到達した上で、嚢胞を摘出した。嚢胞壁は薄く均一で内溶液は無色透明であった。

病理組織検査：HE染色にて、嚢胞壁は線毛を有する多列円柱上皮に覆われ、その下層は厚い膠原繊維から構成されていた。免疫染色にて、ER陽性、

図3 病理組織検査（症例1） HE染色にて単層～三層で細胞質が淡いeosin陽性の中皮細胞を認め、その下層は脂肪に富み、薄い膠原繊維から構成されていた。免疫染色で中皮のマーカーであるカルレチニン陽性であった。

図4-a

図4-b

図4 骨盤MRI画像（症例2） 4-a axial T1強調画像 4-b sagittal T2強調画像
下腹部全体を占拠する直径14.3×10.0×9.0 cmのT1 low・T2 highである境界明瞭な単房性嚢胞を認めた。両側卵巢は描出できなかった。

図5-a

図5-b

図5 腹腔鏡所見（症例2）

5-a 嚢胞表面は腹膜に覆われており、起始部は卵巣や腸管との連続性を認めなかった。

5-b 嚢胞摘出後。後腹膜腫瘍であったことを確認できた。

PgR陽性であることから女性ホルモンに感受性のある上皮であることがわかる。中皮マーカーのcalretininは陰性、Müller管由来上皮で陽性となるCA125は陽性であった。以上より、Müller管嚢胞と診断した。

最終診断：手術所見および病理組織検査より、Müller管由来後腹膜嚢胞と最終診断した。

術後経過：術後は順調に経過し、術後8日目に退院した。

考 察

骨盤内腫瘍はさまざまな臓器が原発巣となりうるため術前に正しく診断できないことがある。今回経験した2症例は、仮性腸間膜嚢胞とMüller管

由来後腹膜嚢胞という非常に稀な疾患であると術後に診断した。

腸間膜嚢胞は、腸間膜に発生する嚢胞の総称であり、比較的稀な疾患である。また、その多くは小児であり成人例は少ない。さらに腸間膜嚢胞の中でも仮性腸間膜嚢胞は極めて稀で、これまでに国内で23例の報告があるのみである^{1,2)}。仮性腸間膜嚢胞の発生機序は、外傷や手術によって炎症性組織が生じ、内腔にリンパ液や血漿成分が貯留して形成するとされている³⁾。これまでの報告23例と自験例を併せた24例で検討すると、男性9例、女性15例と女性に多く、発症年齢は16～84歳であり平均年齢は46.3歳であった。発生部位は、空腸7例、横行結腸7例、回腸4例、十二指腸2例、

図6 病理組織検査（症例2） 嚢胞壁は線毛を有する多列円柱上皮に覆われ、下層は厚い膠原繊維で構成されていた。エストロゲン・プロゲステロン受容体陽性、CA125陽性。

S状結腸2例、回盲部1例、大網1例とさまざまであった。症状は腹痛を訴えるものが12例と多く、腫瘤を自覚していたものが11例あった。本症例のように無症状のものは4例あった。また、腸間膜嚢胞と術前に診断されたものは38%であった。

仮性腸間膜嚢胞は摘出標本の病理組織学的診断によって最終的に診断される。その組織学的所見として、内腔に上皮の裏打ちがなく、繊維組織で形成されることや、免疫染色でcalretinin陽性など中皮由来であることがあげられる^{1,2)}。治療は、症状や合併症に応じて検討されるが、捻転などで強い疼痛を呈した場合、緊急手術が必要である。予後は一般的に良好であり、再発や悪性化の報告はなかった。

後腹膜に発生する腫瘍は全腫瘍の0.2%と少なく、その多くは実質性であり、嚢胞性は約12%である⁴⁾。後腹膜嚢胞は発生起源により、1)尿生殖原性嚢胞、2)結腸原性嚢胞、3)皮様嚢腫、4)リンパ管嚢胞、5)腸性嚢胞、6)外傷性出血による6つに分類され(Handfield-Jonesによる分類)⁵⁾、最も多いのはリンパ管嚢胞である。本症例のMüller管嚢胞は尿生殖原性嚢胞に分類される。Müller管嚢胞の発生原因は、「胎生期にMüller管組織が後腹膜に迷入する」とする説や、男性では「Müller管退縮因子の分泌不全により残存したMüller管が嚢胞化する」説など諸説ある⁶⁾。

後腹膜原発Müller管嚢胞はこれまでに世界で17例が報告されており、自験例が18例目である^{4,11)}。その術前診断は、後腹膜嚢胞9例、腹腔内嚢胞4例、腸間膜嚢胞2例、卵巣嚢腫は、自験例を加え2例、腎嚢胞1例であった。

後腹膜嚢胞は多くが良性であり、Müller管嚢胞もほとんどが良性であるが、少数ではあるが悪性化の報告例があった⁷⁾。後腹膜嚢胞の治療は、症状がなく小さいものでは経過観察、症状があるものや大きいものでは手術が推奨されている。本症例では、画像検査によって悪性を疑う所見はなかったため、腹腔鏡下手術を選択したが、後腹膜Müller管嚢胞の腹腔鏡下手術はこれまでに1例しか報告されていない⁸⁾。画像診断を中心に術前に適切な診断ができれば、後腹膜原発Müller嚢胞は腹腔鏡下手術の良い適応であると思われる。

Müller管嚢胞の確定診断は、摘出標本の病理組織学的診断でおこなわれる^{9,10)}。特に免疫組織学的検査が有用で、エストロゲンレセプターやプロゲステロンレセプターが陽性であることや、CA125が陽性であることがMüller管由来である根

拠とされている。本症例でも免疫組織学的検査が非常に有用であった。

結 語

卵巣嚢腫と術前診断したが、術中・術後に稀な骨盤内嚢胞と診断された2症例を経験した。術前診断が異なると手術完遂が困難になることもあるため、卵巣嚢腫の手術に際しては他臓器由来の腫瘍も念頭に置き準備することが必要であると思われる。

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。

すべての著者は開示すべき利益相反はない。

文 献

- 1) 鈴木一史、他：腹腔鏡下に切除した仮性腸間膜嚢胞の1例、日消外会誌、2010；43：685-690.
- 2) 本間直健、他：GISTとの鑑別が困難であった仮性腸間膜嚢胞の1例、日臨外会誌、2007；68：2356-2361.
- 3) 辻福正、他：仮性腸間膜嚢胞の2例、日臨外会誌、1991；52：1298-1302.
- 4) Armstrong JR, Cohn I. : Primary malignant retroperitoneal tumors. Am J Surg 1965; 110: 937-943.
- 5) Handfield-Jones RM. : Retroperitoneal cysts: the pathology, diagnosis, and treatment. Br J Surg 1924; 12: 119-134.
- 6) Lee J, et al. : Müllerian cysts of the mesentery and retroperitoneum. a case report and literature review. Pathol Int 1998; 48: 902-906.
- 7) Kato S, Ito H, Kobayashi K. : Squamous cell carcinoma in Müllerian duct cyst: report of case. Jpn J Surg 1996; 26: 645-648.
- 8) 金子剛、他：腹腔鏡下に切除した後腹膜Müller管嚢胞の1例、泌尿紀要、2009；55：753-756.
- 9) 林忠毅、他：後腹膜原発Müller管嚢胞の1切除例、日消外会誌、2015；48：429-435.
- 10) 高橋宏明、他：嚢胞液中の腫瘍マーカーが高値を示した後腹膜漿液性嚢胞の1例、日臨外会誌、2000；61：2509-2512.
- 11) 井崎博文、他：後腹膜漿液性嚢胞に対し腹腔鏡下嚢胞摘除術を施行した1例、泌尿紀要、2009；55：753-756.

投稿日：2017年11月14日

採択日：2018年1月15日