症例報告

腹腔鏡下に卵巣を温存し得た腹腔内出血を伴う
両側性広汎性卵巣浮腫の一例

京都大学医学部婦人科学産科学教室

近藤英治、下仲慎平、堀江昭史、千草義継、
村上隆介、濱西潤三、馬場 長、万代昌紀Laparoscopic conservative surgery for bilateral massive ovarian edema
presenting with hemoperitoneumEiji Kondoh, Shinpei Shitanaka, Akihito Horie, Yoshitsugu Chigusa,
Ryusuke Murakami, Junzo Hamanishi, Tsukasa Baba, Masaki Mandai
Department of Gynecology and Obstetrics, Kyoto University

Abstract

Massive ovarian edema is a rare, non-neoplastic tumour-like mass. Massive ovarian edema mostly affects young women of reproductive age, who face a fertility-threatening diagnosis and treatment. We report a case of bilateral massive ovarian edema in a 36-year-old woman presenting with abdominal pain, an abdominal mass and hemoperitoneum. This is the first report of massive ovarian edema accompanied by hemoperitoneum. Ultrasonography showed enlarged multicystic right and left ovaries measuring 158 x 75 mm and 87 x 85 mm, respectively. MRI demonstrated multiple large peripherally located follicles, stromal edema evident by markedly increased T2 signal intensity and weak gadolinium enhancement, and torsion of the left ovary. MRI was useful in the preoperative diagnosis of massive ovarian edema. The patient underwent laparoscopic conservative surgery. Although the left ovary appeared dark purple due to torsion of 540 degrees during the surgery, both ovaries presented a normal appearance on MRI three months after surgery. Minimally invasive surgical treatment is a preferable option for women suspected to have massive ovarian edema.

Key words: hemoperitoneum, laparoscopic conservative surgery, massive ovarian edema

【緒 言】

広汎性卵巣浮腫 (Massive Ovarian Edema; 以下MOE)は、間質の浮腫により非腫瘍性に卵巣が腫大する稀な疾患である¹⁻⁴⁾。MOEは1969年に初めて報告され、現在まで200例弱が報告されている¹⁾。主な症状は下腹部痛、腹部膨満感、腹部腫瘤感であり、月経不順や不妊をきたすこともある¹⁻⁴⁾。MOEは一般に片側性で、卵巣茎捻転による下腹部痛を契機に発見されることが多く¹⁻⁴⁾、腹腔内出血を合併した報告はない。MOEは若年者に好発するにもかかわらず、術前に腫瘍と診断され付属器切除を行われることがあり注意を要する¹⁻³⁾。今

回我々は、術前にMOEと診断し、腹腔鏡下に捻転を解除し卵巣を温存し得た腹腔内出血を伴う両側性MOEの一例を経験したので報告する。

【症 例】

36歳 0 妊 0 産

主訴：左下腹部痛、下腹部腫瘤感

家族歴：母 糖尿病

既往歴：25歳時、某医で多嚢胞性卵巣症候群
(polycystic ovary syndrome; PCOS) 指摘月経歴：初経12歳、20-40日周期。最終月経はX年
12月下旬から7日間

結婚歴：未婚、性交経験なし

現病歴：X+1年1月より腹部腫瘤感と左下腹部痛を自覚していた。下腹部痛は市販の鎮痛薬使用により自制内であったが、精査を希望されX年3月に当科を受診した。受診時の身体所見はバイタルサイン正常、BMI 15.5、腹部は軟であった。右下腹部に新生児頭大の可動性良好な腫瘤を触知した。左下腹部に軽度圧痛あり、反跳痛・筋性防御は認めなかった。直腸診では卵巢腫瘤が骨盤内を占拠していた。ダグラス窩に圧痛を認めなかった。経腹・経直腸超音波検査では子宮は正常大で子宮内に胎嚢は認めず、右卵巢は158x75mmに腫大し、子宮腹側から右臍横に位置していた。また、左卵巢は87x85mmに腫大し、ダグラス窩に存在していた。いずれの卵巢も中心部の腫大した間質周囲に大小様々な多発嚢胞を伴っていた。カラードプラ法では両側卵巢に血流を認めた。腹水は認めなかった。血液検査はWBC 10410/ μ l, Hb 13.2g/dl, Ht 38.7%, CRP <0.1mg/dlであり、生化学検査は全て基準値内であった。腫瘍マーカーはCA125 41.8U/ml, CA19-9 18.9 U/ml, CEA 1.5ng/mlであり、ホルモン値はFSH 7.1mIU/ml, LH <0.1mIU/ml, E2 353.5pg/ml, P4 7.44ng/ml, テストステロ

ン 37.9ng/dl, プロラクチン 34.5ng/mlであった。来院後経過：両側卵巢は著しく腫大しているものの超音波検査で卵巢の構造自体は正常であったことより、腫瘍ではなく、卵巢過剰刺激症候群やhyperreactio luteinalisに類似した非腫瘍性の疾患を疑った。下腹部痛は軽度の間歇的な卵巢腫瘍茎捻転に起因すると推測した。2週間後に造影MRI検査を予約し帰宅とした。しかし、帰宅後より下腹部痛が増悪し、鎮痛薬を服用しても改善せず、嘔気・嘔吐も認めたため翌日再診し、緊急入院となった。

入院後に撮影した造影MRI検査では、正常大の子宮の頭側に新鮮血腫を示唆するT2 低信号、T1軽度高信号の領域を認め、腹腔内出血をきたしたことによる急性腹症と考えられた(図1A)。多発嚢胞が腫大した卵巢辺縁に存在していること、また、腫大した卵巢間質がT2高信号を呈し同部位に淡い造影効果を認めることからPCOSを背景とした両側のMOEと診断した(図1B)。卵巢固有靱帯の血管が捻れている像を認め、左卵巢茎捻転と診断し(図1B)、緊急手術を行った。術中所見：腹腔内に多量の血液貯留を認めた(図

図1 骨盤MRI像

- A. 矢状断(左 T2 強調像、右 T1強調像)。左卵巢はダグラス窩、右卵巢は子宮頭側に位置し、子宮頭側にT2 低信号、T1やや高信号を呈する新鮮血腫を認める。
- B. 横断(左 T2 強調像、右 Gd造影T1強調像)。多発嚢胞が辺縁に存在し、間質は腫大している。間質はT2高信号で、造影効果は弱いことから浮腫をきたしていると考えられる。子宮と卵巢をつなぐ血管が捻れており、左卵巢茎捻転と診断した。

図2 術中所見

A. 腹腔内に多量の血液貯留を認める。B. サンドバルーンカテーテル®を用い順次卵胞を穿刺し、術野を確保した。C. 左卵巣は540度捻転していた。D. 血腫が固着しており自然破綻による出血部位と推定された。

2 A)。右卵巣は新生児頭大で白色、左卵巣は超拳大で暗赤紫色であった。左右卵巣表面には大小様々な囊胞があり、順次囊胞を穿刺し、黄色透明の内容液を吸引した（図2 B）。左右卵巣腫瘍を縮小させ良好な視野を確保したところ、左卵管・卵巣は時計方向に540度捻転していた（図2 C）。左卵巣に存在する囊胞の1つが破綻していることが確認され、同部位に血腫が固着していたことより出血部位と推定した（図2 D）。左卵巣の捻転を解除したところ、色調は暗赤紫色のまま不変であったが卵巣を温存する方針とした。右卵巣囊胞壁の一部を生検後、左卵巣から活動性の出血がないことを確認し手術を終了した。手術時間は1時間27分、出血量は、ほとんどが手術開始時に存在した腹腔内出血（凝血塊含む）であり1880g、術後はHb5.8g/dlと貧血を認めたが輸血は要さず術後6日目に退院となった。

退院後の経過：術後、卵巣は縮小し症状も消失した。生検組織の病理診断は正常卵胞であり、組織に浮腫は認めなかった。MOEの再発予防効果を期待して、低用量エストロゲン・プロゲスチン配合薬の服用を開始した。術3ヶ月後に撮影したMRI検査では両側卵巣に腫瘍性病変はなく、温存した左卵巣に卵胞が確認された。手術後7ヶ月の

時点で卵巣の再腫大を認めていない。

【考 察】

腹腔内出血を合併したMOEの報告は本症例が初めてである。出血の原因としては、排卵に伴う卵巣出血、捻転により虚血・脆弱化した囊胞壁の自然破綻、内診による誘因などが考えられる。発症年齢は平均20歳と比較的若年者に多いが¹⁾、本症例のように30歳以上の報告も散見される²⁵⁾。卵巣の大きさは5.5~35cm（平均11.5cm）との報告もあるが¹²⁾、本症例のように大きな卵胞を多数伴い、卵巣腫瘍に占める間質部分の割合が比較的低いMOEは稀である。

MOEの病態は、部分的/間歇的な卵巣茎捻転により静脈/リンパ還流が障害され、卵巣浮腫をきたすという説が最も支持されている¹⁶⁾。しかし、卵巣茎捻転症例の大多数はMOEを発症せず、また、卵巣茎捻転を認めない症例にもMOEは発症する。手術の際に捻転を認めない症例は、間歇的な卵巣茎捻転により生じたMOEで、捻転していない時期に手術が行われたに過ぎない、という説も広く支持されているが¹²⁾、明確な根拠はない。本症例でも右卵巣には全く捻転を示唆する症状や所見は認めず、MOEの全てを茎捻転だけで説明

することは難しい。MOEの多くは正常卵巣に発症するが、本症例のようにPCOS合併の報告も複数ある^{3,6)}。MOEの発症機序は未だ解明されておらず、PCOSで変異している遺伝子⁷⁾とMOEで変異している遺伝子に共通性がある可能性もあるため、今後の検討によりMOEの発症機序の解明が期待される。

MOEは若年者であっても悪性卵巣腫瘍の可能性を疑われることが多く、177例中157例(88.7%)で付属器切除が行われた報告がある⁸⁾。術前に本疾患を疑うには、産婦人科医がMOEに特徴的なMRI画像所見を知っておくことが有用である。腫瘍辺縁に多発卵胞を認め、充実部が浮腫を反映してT2強調像で高信号を呈し造影効果が弱い場合は、MOEを疑うべきである^{2,4,9)}。したがって、若年者が腹痛を呈し、超音波検査で辺縁に多発嚢胞を伴う充実性卵巣腫大を認める場合は血液検査(腫瘍マーカーなど)および造影MRI検査を行い、MOEが疑われる症例では患側卵巣の生検、嚢胞穿刺、捻転解除のみ行い手術を終了する。本症例も術前にMOEと画像診断していたため、腹腔鏡下に両側卵巣の温存が可能と考え低侵襲な腹腔鏡手術を選択し、生検、嚢胞穿刺、捻転解除のみ行った。捻転を解除しても卵巣の色調が変わらず暗赤紫色を呈する場合、壊死していると判断され付属器切除が行われることがある。しかし、卵巣機能の回復が難しいと見受けられる症例であっても、その後90%以上の症例で卵巣機能が回復したとの報告もある^{10,11)}。本症例も捻転解除後の卵巣の色調は回復しなかったが、超音波検査やMRI検査で左卵巣への血流が完全には遮断されていなかったことも考慮し卵巣を温存したところ、術後に卵巣機能が保たれていることが確認された。したがって、MOEで捻転を認め卵巣機能が廃絶しているように外観上思われた場合でも、若年者に対しては卵巣を温存することが望ましい。

MOEの再発予防のため卵巣固定や術後2-3ヶ月の低用量エストロゲン・プロゲスチン配合薬の服用を推奨する報告がある⁸⁾。しかし、これらの予防法に明確な根拠はなく、またMOEの再発頻度も不明である。本症例では卵巣固定は行わず、PCOSに対する治療に加えてMOEの再発予防効果を期待して低用量エストロゲン・プロゲスチン配合薬の投与を行なった。MOEの再発率や低用量エストロゲン・プロゲスチン配合薬によるMOE再発予防の有用性を明らかにするためには症例の集積が望まれる。

【結 語】

両側卵巣に発生した稀なMOEの一例を、両側ともに卵巣温存することができた。そのためには、MOEに特徴的な臨床背景やMRI画像所見に関する知識を身につけ、術前に本疾患を疑うことが重要である。

本論文の要旨は第58回日本産科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) Nigam JS, et al. : Acute abdomen with a misleading clinical entity. SAGE Open Med Case Rep. 2017 ; 5 : 2050313X17744984.
- 2) Miyawaki D, et al. : Bilateral massive ovarian edema: a case report including MR findings and etiology. Nihon Igaku Hoshasen Gakkai Zasshi. 2005 ; 65: 455-458.
- 3) 原田 美由紀、他 : 腹腔鏡下手術にて卵巣を温存し得たMassive Ovarian Edemaの一例、日産婦内視鏡会誌、2008 ; 24: 413-417.
- 4) 松浦 美幸、他 : 付属器茎捻転を生じた卵巣広汎性浮腫に対し腹腔鏡下に卵巣温存を試みた一例、日産婦内視鏡会誌、2017 ; 33: 239-242.
- 5) Lee AR, et al. : Massive edema of the ovary: imaging findings. AJR Am J Roentgenol. 1993 ; 161 : 343-344.
- 6) Guvenal T, Cetin A, Tasyurt A : Unilateral massive ovarian edema and polycystic ovaries. A case report. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol. 2001 ; 97 : 258-259.
- 7) Crespo RP, et al. : An update of genetic basis of PCOS pathogenesis. Arch Endocrinol Metab. 2018 ; 62 : 352-361.
- 8) Praveen R, et al. : A clinical update on massive ovarian oedema - a pseudotumour? Ecancermedicalscience. 2013 ; 7:318.
- 9) Kramer LA, Lalani T, Kawashima A : Massive edema of the ovary: high resolution MR findings using a phased-array pelvic coil. J Magn Reson Imaging. 1997 ; 7:758-760.
- 10) Oelsner G, et al. : Long-term follow-up of the twisted ischemic adnexa managed by detorsion. Fertil Steril. 1993 ; 60 : 976-979.
- 11) Shalev E, et al. : Recovery of ovarian function after laparoscopic detorsion. Hum Reprod. 1995 ; 10 : 2965-2966.

投稿日 : 2018年 8 月17日

採択日 : 2018年10月 8 日