症例報告

骨盤腹膜炎を契機に診断された遊離卵巣嚢腫の一例

秋田大学医学部産婦人科

富樫嘉津恵、熊澤由紀代、白澤弘光、久木元詩央香、
尾野夏紀、佐藤 亘、清水 大、寺田幸弘Diagnosis of an auto-amputated endometrial ovarian cyst
based on a clinical presentation of pelvic peritonitis: A case report

Kazue Togashi, Yukiyo Kumazawa, Hiromitsu Shirasawa, Shioka Kukimoto

Natsuki Ono, Wataru Sato, Dai Shimizu, Yukihiro Terada

Department of Obstetrics and Gynecology, Akita University Hospital

Abstract

Introduction: Ovarian auto-amputation is extremely rare and is most commonly attributed to chronic adnexal torsion and subsequent devascularization that precipitate infarction and necrosis. We describe a woman (Jehovah's witness) who presented with an inflamed abdominal cyst, which was diagnosed as an auto-amputated endometrial ovarian cyst, following laparoscopic surgery.

Case presentation: A 45-year-old Jehovah's witness was referred to our hospital with acute abdominal pain. She had complained of dysmenorrhea prior to referral. Laboratory data revealed evidence of severe inflammation (white blood cell count 12400 cells/ μ L, C-reactive protein 17.4 mg/dL).

MRI revealed a cystic pelvic tumor with features of a benign ovarian cyst. She received intravenous antibiotics with resolution of inflammation following this conservative therapy after which we performed laparoscopic surgery for removal of the pelvic mass. Intraoperatively, we performed careful adhesiolysis followed by meticulous exploration of the pelvic cavity. We performed cystectomy and left adnexectomy with insertion of multiple drains into the peritoneal cavity.

Discussion: Based on the laparoscopic and histopathological findings, the patient was diagnosed with chemical peritonitis associated with a wandering ovarian endometrial cyst.

Conclusion: We report successful but significantly challenging laparoscopic intervention for a wandering ovarian endometrial cyst in a woman with chemical peritonitis.

Key words: Acute abdominal pain; Wandering ovarian cyst; Endometriosis

緒 言

遊離卵巣嚢腫は稀な疾患であり、術前の画像診断は困難とされ、手術により最終診断されることが多い。今回我々は、骨盤腹膜炎を契機に診断された遊離卵巣嚢腫に対して腹腔鏡下で加療した症例を経験したので報告する。なお、本症例を報告するにあたり、十分な説明と個人情報保護に配慮し、患者本人より同意を得ている。

症 例

45歳 G0P0 未婚 BMI 23.9 事務員 エホバの証人。既往歴：高血圧。内服薬：シルニジピン。手術歴：なし。アレルギー：なし。婦人科検診歴：なし。
月経歴：初経12歳，未閉経，月経周期は整，28日型，過多月経あり。月経困難症あり。
生活歴：飲酒なし，喫煙なし。家族歴：特記なし。
現病歴：月経第1日に発熱、急性の右下腹部痛を

図1 造影CT検査（水平断、冠状断、矢状断）
右下腹部から臍下に達し子宮底部に接する、造影効果の乏しい最大径12cm、辺縁整の内部は均一な嚢胞（白矢頭：腹部嚢胞）を認める。

図2 炎症所見の経時的変化
左縦軸：WBC ($\times 10^3/\mu\text{L}$)、右縦軸：CRP (mg/dl)、横軸：日付 FMOX：フロモキシセフ、CEZ：セファゾリン

主訴にかかりつけ内科を受診して経腹超音波検査で腹部腫瘍を指摘され造影CT検査（図1）と炎症所見の上昇（図2）から総合病院婦人科に紹介され、同日入院して骨盤腹膜炎の診断で抗生剤投与された。感染細菌は同定されなかった。血液検査でCA125=68.4U/ml、CA19-9=37.9U/mlと軽度上昇あり。入院後のMRI検査（図3）で右卵巣は正常であり、左卵巣に5cm大の多房性内膜症性嚢胞を認めた。破裂所見なし。CTで指摘された腹部嚢胞は子宮卵巣との連続性が乏しい腫瘍であった。手術加療が検討されたが、宗教上の輸血拒否への対応から当院へ転院した。腸間膜嚢胞を鑑別に消化器外科医立ち合いの下、第4病日に腹腔

鏡下に観察・癒着剥離した。腸管との連続性を認めず腫瘍摘出術、左付属器切除術を施行した。

手術所見

術式：腹腔鏡下腫瘍摘出術および左付属器切除術
手術時間：1時間50分 出血量：100ml（輸血なし）

手術は全身麻酔下碎石位にて施行した。臍部よりオープン法にて5mmカメラトロッカーを挿入しCO₂気腹した（図4左）。子宮は正常大（図5A）、臍部直下に白色皮膜に覆われた腫瘍を認め、上腹部から右側腹壁にかけて腹膜や腸管と広く癒着していた（図5B～D）。臍部をEZアクセスに入れ替え、左側腹部・左上腹部に5mmポートを設定

図3 造影MRI検査

上段：矢状断 左よりT1強調 T2強調 DWI 下段：T1強調脂肪抑制造影像 左より水平断 矢状断 冠状断

腹部嚢胞（白矢頭）内にはデブリス様像が描出される。腫瘍辺縁は整で、一部拡散能亢進を認めるが同部位の造影効果は乏しく、脂肪抑制で抑制されない。左卵巢腫瘍は多房性でT2高信号のチョコレート嚢胞の所見で充実部分なし。大きさ・位置は2日前のCT所見と変わらない。

図4 ポート配置 左)手術開始時 右)ポート追加後

した（図4右）。腹部腫瘍は子宮・卵巢との明らかな連続性は認めず、観察途中で脆弱な腫瘍被膜が破綻した。嚢胞内容は褐色泥状で約800mlあった（図5E）。小腸から虫垂にかけて広範囲の癒着を剥離したが、嚢胞には明らかな血管による連続性は認めず、孤立性に存在していた。子宮・卵巢・腸管・腸間膜や大網との連続性も認めなかった（図5F・G・I・K）。右卵巢は子宮背側と癒着

していたが正常大であり、右卵管も異常を認めなかった（図5H）。左卵巢はダグラス窩に嵌頓し、内膜症性嚢胞を含む多房性の腫瘍であったが、左卵管は正常であった（図5J）。癒着は容易に剥離された。嚢腫壁は一部に5mm程度の肥厚を認めた（図5L）。腹腔内を十分に洗浄し、ドレーンを留置して終了した。

図5 術中所見

- A) 左側壁に沿ってカメラを進めると左卵管・子宮が嚢胞より尾側に確認できた。
- B) 嚢腫表面は癒着した小腸・横行結腸に覆われていた。
- C) 臍部直下に白色皮膜に覆われた腫瘍を認めた。腹壁と嚢腫壁は癒着し腹腔右側はこの時点では視野が取れなかった。
- D) Bの小腸と横行結腸の間の膜状癒着は薄く、辺縁から容易に剥離された。
- E) 観察中に脆弱な腫瘍被膜が破綻した。内容はチョコレート様で約800mlあった。
- F) 腹壁から嚢腫壁は軽い牽引のみで容易に剥離された。
- G) 右側壁からも嚢腫壁は軽い牽引のみで容易に剥離された。
- H) 正常大の右卵巣・卵管を確認した。嚢腫壁とは牽引のみで容易に剥離された。
- I) 嚢腫壁を挙上して小腸との癒着も牽引のみで容易に剥離された。
- J) ダグラス窩の左卵巣嚢腫は周囲と癒着しておらず容易に挙上された。
- K) 大網は嚢腫壁と接していたが索状構造無く軽い牽引のみで剥離された。
- L) 破綻部近傍で嚢腫壁は一部で肥厚していたものの白色結節や充実部分は認めなかった。

術後経過

発熱と腹痛・炎症所見は速やかに改善し、合併症なく術後4日目に退院した。術後療法としてジェノゲスト内服を開始した。腹部嚢胞の病理所見は線維性結合組織の増生と肉芽組織の形成あり、被覆する上皮細胞は認めず、ヘモジデリン貪食とマク

ロファージの集簇あり、P R陽性・E R弱陽性の子宮内膜症性嚢胞と診断された(図6)。

考 察

遊離卵巣嚢腫(wandering cyst, parasitic ovarian cyst, auto-amputated ovarian cyst or acquired

図6 病理検査

右上のスケールバーは全て100 μ mを示す。

A) 腹腔内嚢胞（肥厚部分）HE染色 20×100倍。

B) 腹腔内嚢胞 HE染色 100倍。

線維性結合組織の増生と肉芽組織の形成あり、被覆する上皮細胞は認めない。ヘモジデリン貪食とマクロファージの集簇あり。

C) 左卵巣（チョコレート嚢胞）HE染色 100倍。ヘモジデリン貪食とマクロファージの集簇あり。

D) 腹腔内嚢胞 α SMA 陽性 20×100倍。

E) 腹腔内嚢胞 PgR 陽性 20×100倍。

F) 腹腔内嚢胞 ER 弱く陽性 20×100倍。

G) 腹腔内嚢胞 CD10 陰性 20×100倍。

上記所見よりP R陽性・E R弱陽性の子宮内膜症性嚢胞と診断した。

ectopic ovary) は卵巣腫瘍などが茎捻転後に離断したと考察される稀な病態であり、成人女性での発症率は婦人科受診患者の2-70万例に1例程度との報告がある¹⁾。PubMedでは卵巣線維腫で1例²⁾の他は36例が成熟嚢胞性奇形腫で症例報告されている³⁻⁹⁾。医学中央雑誌では会議録として2016年に塚本らが良性漿液性嚢胞で1例¹⁰⁾、2018年に天谷らはmassive ovarian edemaが遊離腫瘍となった1例¹¹⁾を報告している。内膜症性嚢胞は2015年に中林らが無症候で診断され腹腔鏡手術した10cm大嚢胞を1例¹²⁾報告している。栄養血管は同定されず腹腔内所見から遊離嚢胞と診断された。本症例のような内膜症病変では遊離卵巣嚢腫としての報告は乏しく、周囲との癒着発症のリスクから捻転による遊離は否定的であるとの見方もある。

他に、卵巣外の子宮内膜性嚢胞を呈する病態としてextra ovarian endometrioma (EOE) が報告されている。EOEの発生部位は腹膜、子宮広間膜、仙骨子宮靱帯などが多く、術中所見から腫瘤の付着部位が同定され、嚢胞への付着茎や栄養血管が定義できるものが多く報告されている。高橋ら¹³⁾は強固に周囲臓器と癒着して剥離により腸管漿膜を欠損した症例・子宮筋腫の合併切除を要した症例など、2症例での周囲臓器の損傷を報告している。長尾ら¹⁴⁾は本症例に類似した比較的容易に剥離された10cm大嚢胞について、右仙骨子宮靱帯に付着位置を認め、病理所見から卵巣間質構造を認めず、EOEとして報告している。一方で、腫瘤の付着部位に関して近年の報告では明示されないものもあり、福岡ら¹⁵⁾は膀胱子宮窩と大網にわずかな癒着のみの症例を報告している。遊離卵巣嚢腫とEOEに厳密な分類は困難である。その他、卵巣外に子宮内膜症性嚢胞が疑われる場合、既往歴によっては比較的稀な術後Ovarian remnant syndrome (ORS) に発生する子宮内膜症性嚢胞との鑑別も必要である。

本症例は手術既往なく、ORSは否定的である。腹部嚢胞は術中所見で腸間膜を含め周辺臓器と広汎に膜性に癒着していた。初発疼痛は右側腹部であったが、右卵巣は正常大であり茎捻転の痕跡は認めなかった。遊離卵巣内膜症性嚢胞に嚢胞内出血したことにより急性腹痛が発症した可能性がある。一方でEOEの栄養血管が捻転離断して炎症の原因になった可能性も検討された。嚢胞への付着茎や栄養血管が同定できない点から、本症例では発症母地が同定できない内膜症性嚢胞の遊離卵

巣嚢腫と考察した。

嚢胞の大きさと炎症所見から術前には開腹手術の選択肢も検討された。実際にはポート位置に術中の追加変更を要したものの、腹腔鏡手術による利点が多かった。腫瘍の大きさと癒着により視野の確保に難渋したものの、腫瘍全周を詳細に鏡視下で観察して剥離を進められた。術後回復は順調であった。重見らにより、重症骨盤内感染症例において、腹腔鏡手術は開腹術に比較して手術時間が短く輸血が少ないこと、合併症や死亡率の非劣性が示されている¹⁷⁾。本症例には輸血制限もあり、腹腔鏡手術は非常に有用であった。

信仰上の輸血拒否で代表的宗教である「エホバの証人」の信者は国内で21万人と報じられており、決して稀な事象ではない¹⁸⁾。救急医療など緊急時に発覚することで対応に苦慮し診療に遅滞が生じるリスクも指摘されている。輸血拒否患者への婦人科腹腔鏡手術について、本邦では松浦らが2012年に5例の腹腔鏡下卵巣腫瘍摘出術について報告しているが、出血量は少量から550mlであり輸血を要した症例はなかった¹⁹⁾。出血が想定される腹腔鏡下子宮筋腫核出術などに関しての婦人科腹腔鏡患者報告はまだ少ない。輸血や緊急手術は患者の意思決定に委ねるべきであり、説明を怠った医師には、患者の人権侵害の不法行為責任がある、との判例もあり、治療方針の選択決定について十分な情報提供と共に患者の自己決定権に配慮し、輸血拒否患者への受け入れ体制を各医療機関であらかじめ明示する必要がある。

結 語

骨盤腹膜炎を契機に診断された内膜症性の遊離卵巣嚢胞の一例を経験した。他科疾患との鑑別に苦慮すること多いが、腹腔鏡下手術が診断と治療に有用と考えられた。

本論文の要旨は第59回日本産科婦人科内視鏡学会において発表した。

全ての著者は開示すべき利益相反はない。

文 献

- 1) Ushakov FB, 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.
- 2) Yazawa H, et al.: An unusual presentation of

- ovarian fibroma originating from an autoamputated ovary. *Gynecol Minim Invasive Ther* 2019; 8: 40-43.
- 3) John BM.: Ectopic Ovary With Dermoid Cyst as a Result of Possible Asymptomatic Autoamputation. *J Hum Reprod Sci*. 2017; 10: 226-230.
 - 4) Lee KH, et al.: Autoamputation of an ovarian mature cystic teratoma: a case report and a review of the literature. *World J Surg Oncol*. 2016; 14: 217.
 - 5) Khoo CK, et al.: Parasitic dermoid cyst of the pouch of Douglas: a case report. *J Minim Invasive Gynecol* 2008; 15: 761-763.
 - 6) Hegde P.: Extragonadal omental teratoma: a case report. *J Obstet Gynaecol Res*. 2014; 40: 618-621.
 - 7) Lachman MF, Berman MM: The ectopic ovary. A case report and review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 1991; 115: 233-235.
 - 8) Peh WC, Chu FS, Lorentz TG: Painful right iliac fossa mass caused by a migrating left ovary. *Clin Imaging* 1994; 18: 199-202.
 - 9) Yoshida A, et al.: Case of mature cystic teratoma of the greater omentum misdiagnosed as ovarian cyst. *J Obstet Gynaecol Res*. 2005; 31: 399-403.
 - 10) 塚本早貴, 他.: 腹腔鏡下手術により判明した遊離卵巣嚢腫の一例. *日本産科婦人科内視鏡学会雑誌*, 2016; 32 suppl: 243.
 - 11) 天谷優介, 他.: 妊娠中に発見されたmassive ovarian edemaが産褥期に異所性卵巣となり, 腹腔鏡した手術を行った一例. *日本産科婦人科学会雑誌*. 2018; 70: 1028.
 - 12) 中林誠, 他.: O-256 術中に判明した無症候の遊離卵巣腫瘍の一例. *日本産科婦人科内視鏡学会雑誌*, 2015; 31 suppl: 208.
 - 13) 高橋千波, 他.: 診断に苦慮した卵巣外子宮内膜症性嚢胞の2症例. *関東産婦誌* 2012; 49: 543-548.
 - 14) 福岡佳代, 他.: 膀胱子宮窩に孤立性に存在した子宮内膜症性嚢胞の1例. *東京産婦会誌* 2014; 63: 234-238.
 - 15) 浜口大輔, 他.: 膀胱子宮窩腹膜から発生したと考えられた巨大内膜症性嚢胞の1例. *日エンドメトリオーシス会誌* 2014; 35: 174-178.
 - 16) 長尾有佳里, 他.: 診断および治療に腹腔鏡下手術が有用であった卵巣外子宮内膜症性嚢胞の一例. *日産婦内視鏡会誌* 2017; 33: 173-177.
 - 17) Shigemi D, et al.: Laparoscopic compared with open surgery for severe pelvic inflammatory disease and tubo-ovarian abscess. *Obstet Gynecol*. 2019; 133: 1224-1230.
 - 18) J.W.Org. Jehovah's witnesses - religious and ethical position on medical therapy, child care & related matters. <https://www.jw.org/en/medical-library/strategies-downloads/religious-and-ethical-position-medical-therapy/>. (最終アクセス日2020年1月11日)
 - 19) 松浦祐介, 他.: 輸血拒否患者に対する婦人科内視鏡手術の経験. *日産婦内視鏡会誌*2012; 28: 465-470.

投稿日：2020年1月29日

採択日：2020年3月24日