症例報告

診断および治療に難渋したGartner管嚢胞の一例

福井大学医学部附属病院 産科婦人科

八代憲司、井上大輔、宮崎有美子、大沼利通、

津吉秀昭、黒川哲司、吉田好雄

Gartner's duct cysts: A diagnostic and therapeutic dilemma

Kenji Yashiro, Daisuke Inoue, Yumiko Miyazaki, Toshimichi Onuma,

Hideaki Tsuyoshi, Tetsuji Kurokawa, Yoshio Yoshida

Department of Obstetrics and Gynecology, University of Fukui Hospital

Abstract

Gartner's duct cysts often occur in the deep and anatomically inaccessible areas of the pelvis and are therefore difficult to diagnose and treat. We report a case of a Gartner's duct cyst that was diagnosed using laparoscopic biopsy and was treated with tetracycline sclerotherapy. A 43-year-old woman was referred to our hospital with lower urinary tract symptoms. Magnetic resonance imaging of the pelvis revealed a multilocular cystic tumor (40 mm × 25 mm) between the bladder and the anterior vaginal wall. Image-guided transvaginal fine-needle aspiration was performed, and based on cytological evaluation of the tumor contents, we suspected adenocarcinoma and performed a laparoscopic biopsy for diagnostic confirmation. We used the technique of dissection of the vesicovaginal pouch toward the Aa point, similar to laparoscopic sacral colpopexy and designed an approach for access to the tumor at the anterior vaginal wall. Histopathological evaluation of the resected specimen showed that the tumor wall was covered with flat to cubical epithelium without evidence of malignancy. Immunohistochemical evaluation showed cells with immunopositivity for CK7 and immunonegativity for CK20 and MIB-1 levels <5%. Based on these findings, we confirmed the diagnosis of a Gartner's duct cyst. The cystic fluid re-accumulated after the laparoscopic biopsy, with recurrence of lower urinary tract symptoms. Tetracycline sclerotherapy was performed and led to cyst shrinkage with improvement in the patient's symptoms.

A laparoscopic approach, specifically a bladder-vaginal detachment procedure performed via laparoscopic sacral colpopexy is useful to treat pelvic floor cystic tumors. Tetracycline sclerotherapy may be useful for conservative management of Gartner's duct cysts or recurrence.

Key words: Gartner's duct cyst, laparoscopic surgery, tetracycline

【緒 言】

Gartner管は、胎生期のWolff管が腔壁や子宮頸部に遺残したものであり、それが嚢胞化したものをGartner管嚢胞という。基本的には良性疾患であるが、疼痛や尿路症状をきたすことがあるため、何らかの治療を要する場合が多い。Gartner管嚢

胞の治療として、嚢胞穿刺や造袋術、嚢胞摘出術などが行われるが、骨盤底深部に嚢胞が存在する症例では、診断や治療が困難な場合も少なくない。今回我々は、悪性が疑われた腔壁腫瘍に対して、腹腔鏡下生検によりGartner管嚢胞と診断し、テトラサイクリン注入療法により治療を行った一例を報告する。患者本人へプライバシー保護に留意

責任著者：井上大輔（福井大学医学部附属病院 産科婦人科） E-mail：ddd@u-fukui.ac.jp

投稿日：2020年11月2日／採択日：2021年1月20日

した上で文献報告を行うことを説明し、文書で同意を得た。

【症 例】

43歳、1 妊 0 産（1 回人工妊娠中絶）、既往歴に特記事項なし。排尿時不快感、残尿感、頻尿を主訴として近医泌尿器科を受診した。急性膀胱炎の診断で抗生剤内服により加療されたが、症状の改善がみられなかった。腔鏡診では腫瘍の存在を示唆するような腔壁の膨隆はみられなかったが、膀胱鏡検査と経腹超音波断層像で膀胱三角部の粘膜下に嚢胞性腫瘍を認め、尿道憩室または腔壁腫瘍の疑いで、当院産婦人科および泌尿器科へ紹介となった。

骨盤部MRI画像では、膀胱と腔前壁の間に40mm×25mmの多房性嚢胞性腫瘍を認めた（図1）。膀胱尿道造影では、嚢胞と膀胱尿道との交通を疑う瘻孔を認めなかった。診断目的にエコーガイド下に経腔的腫瘍穿刺を施行し、黄色透明の内容液を20ml吸引した。腫瘍内容液の細胞診では、核異型を有する細胞が散見され、免疫組織化学染色でMOC31陽性、CEA陽性、BerEP4陽性、PAX8陽性を示し、adenocarcinomaが疑われた。以上の所見からGartner管嚢胞由来の腺癌を疑い、診断確定を目的とした腫瘍生検、摘出が必要と判断した。経腔的に腔壁切開を行い、腫瘍摘出を検討したが、腔入口部から腫瘍までの距離があったため視野不良、操作制限によって安全に手術を行うことが困難と予想され、腹腔鏡下手術を計画した。細胞診では悪性腫瘍を否定できない所見であったため通常は被膜破綻させずに腫瘍の完全摘出が望まれるが、このためには周辺臓器の合併

切除を伴う可能性が高く、非常に侵襲的である。後述するが、Gartner管嚢胞の細胞診は過大評価される場合があり、疫学的にGartner管嚢胞の悪性化は極めて稀であることもふまえ、より低侵襲な腹腔鏡アプローチを検討した。腫瘍の完全摘出は困難である可能性、悪性腫瘍であった際には被膜破綻による腹腔内への腫瘍細胞散布が懸念されること、これらのリスクベネフィットについて十分にインフォームドコンセントを行い、腹腔鏡下腫瘍生検、摘出を行う方針で合意した。

我々は、本邦における腹腔鏡下仙骨陰固定術で広く行われている、膀胱腔間隙の剥離手技を利用し、膀胱腔間隙からAa点へ向けて剥離を進め、腫瘍へ到達するアプローチを計画した（図2）。膀胱子宮窩腹膜を腹側へ挙上し、腔より自在鉤を前腔円蓋へ挿入することで術野を確保した。膀胱腔中隔の疎な結合組織を切開し、膀胱腔間隙をAa点へ向けて剥離を進めた。内診指と経腔超音波断層像で腫瘍の位置まで到達したことを確認したが、腫瘍壁と周囲組織の境界が不明瞭で、剥離困難であったため、可及的に腫瘍を切除する方針とした。腫瘍壁を切開すると、腫瘍内容液は乳白色で、腫瘍壁に壁在結節は認めなかった（図3）。膀胱損傷の有無を確認するために、膀胱内にインジゴカルミン溶解生理食塩水150mlを注入し、色素の漏出が見られないことを確認した。後に、剥離部の止血を確認し、膀胱子宮窩にドレーンを留置して手術を終了した。術後経過は良好で、術後6日目に退院とした。病理組織学的検査では、腫瘍は核異型の乏しい扁平～立方上皮で被覆されており、間質への浸潤は認めなかった。免疫組織化学染色ではCK7陽性、CK20陰性、MIB-1<5%で

図1 骨盤部MRI画像 左：矢状断 右：水平断
膀胱と腔前壁の間に40mm×25mmの多房性嚢胞性腫瘍を認める。

図2 骨盤部MRI 画像矢状断と腹腔鏡下仙骨固定術の術中写真
膀胱腔間隙をAa 点へ剥離を進めた部位に腫瘍が存在すると予想する。

図3 本症例の術中写真
膀胱腔間隙 (▲) をAa 点へ剥離を進め、腫瘍壁 (→) へ到達した。
腫瘍内容液は乳白色で、腫瘍壁に壁在結節は認めなかった。

あり、Gartner管嚢胞と最終診断した(図4)。

術後14日目の経膈超音波断層像で、43mm×26mmの液貯留を認め、残存嚢胞からの分泌液貯留と考えられた。術前にみられた下部尿路症状も再燃した。再手術による嚢胞摘出術は困難と判断し、嚢胞縮小を目的としたテトラサイクリン注入療法を施行する方針とした。テトラサイクリンの

使用に際し、院内医薬品適応外使用の承認を得た。生殖補助医療における採卵手技を用いて、経膈超音波ガイド下に前膈壁の嚢胞を確認しながらKITAZATO needle 20G(株式会社北里コーポレーション)で穿刺した。淡桃色の内容液を8ml吸引した後に、テトラサイクリン溶解液(ミノサイクリン100mg[®]+生理食塩水100ml)を同量8

図4 病理組織学的検査
腫瘍は核異型の乏しい扁平～立方上皮で被覆されており、間質への浸潤は認めない。

ml嚢胞内へ注入した。注入から24時間後、再度経腔的に嚢胞を穿刺し、内容液13mlを吸引した。テトラサイクリン注入療法1ヶ月後、嚢胞は20mm大に縮小し、下部尿路症状も軽快した。その後も症状再燃はなく術後2年経過しており、外来経過観察中である。

【考 察】

穿刺細胞診により悪性が疑われた腔壁嚢胞性病変に対して、腹腔鏡下生検を行いGartner管嚢胞と診断し、テトラサイクリン注入療法を追加することにより自覚症状の改善が得られた一例を経験した。

Gartner管嚢胞は胎生期のWolff管遺残であるGartner管が嚢胞化したものである。Wolff管とMüller管の発生異常に起因するため、泌尿生殖器系の奇形を合併することがある。成人女性の約25%にGartner管を認め、その1%がGartner管嚢胞になると報告されている¹⁾。通常は無症状であり、骨盤部の画像検査で偶発的に発見されることが多いが、嚢胞サイズが増大すると周囲臓器を圧迫し、排尿困難、腹部違和感、疼痛、帯下増加などの症状を来す。Gartner管嚢胞の治療として経腔的嚢胞穿刺や造袋術、嚢胞摘出術などがあるが、標準治療として確立したものがないのが現状である。Sida NiuらによるGartner管嚢胞92例の検討

では、50例に嚢胞摘出術、15例にテトラサイクリン注入療法、14例に造袋術、9例に嚢胞部分切除術、4例に嚢胞穿刺ドレナージが施行されたと報告している²⁾。各種治療後の再発率は、嚢胞摘出術8% (4/50)、テトラサイクリン注入療法0% (0/15)、造袋術7% (1/14)、嚢胞部分切除術0% (0/9)、嚢胞穿刺ドレナージ25% (1/4) と報告されているが、治療後の経過観察期間や嚢胞再発の有無が不明な症例も含まれており、再発率を過少評価している可能性がある。

本症例では、嚢胞穿刺で得られた内容液の細胞診でadenocarcinomaが疑われた。しかし、Gartner管嚢胞に由来した悪性腫瘍の発生は極めて稀とされる³⁾。中腎管遺残組織の細胞は、核が上皮細胞の表面に突出するhobnail cell様の所見を呈する例もあり、N/C比の高い異型細胞と判断される可能性があるため慎重な評価が必要である⁴⁾。嚢胞性病変が悪性である場合には、腔癌に準じて前方骨盤内蔵全摘出や同時放射線化学療法などを考慮するが、侵襲性が高く術後のQOLの低下を招く恐れがある。Gartner管嚢胞に由来した悪性腫瘍は稀ではあるが、本例のような腔壁嚢胞は細胞診だけでなく、組織診により診断を確定することが望ましいと考える。

本症例では膀胱と尿道に近接した骨盤底深部に嚢胞が存在しており、開腹でのアプローチは困難

表 診断、治療に腹腔鏡を用いたGartner管嚢胞症例

著者 (年)	年齢	妊娠分娩歴	生殖泌尿奇形	症状	サイズ	部位	術式	経過
Castagnetti M 2008 ⁷⁾	6	G0P0	左腎欠損	尿失禁	7cm	ダグラス窩	造袋術	16ヶ月 再発なし
古澤 2010 ⁸⁾	23	G0P0	右腎欠損	膿性帯下 下腹痛	NA	右傍子宮頸部	嚢胞摘出	NA
米田 2011 ⁹⁾	13	G0P0	なし	下腹痛	4cm	子宮頸部後面	嚢胞摘出	11ヶ月
大橋 2018 ¹⁰⁾	16	G0P0	右腎無形成, 不全中隔子宮, Herlyn-Werner 症候群	腰痛	6cm	右傍子宮頸部	嚢胞摘出	NA
自験例	43	G1P0	なし	残尿感 頻尿	4cm	前腔壁	腫瘍生検	24ヶ月 増大なし

G : gravity P : parturition NA : not available

である。腔壁に沿って嚢胞が存在し腔前壁が膨隆している症例では、経腔的な組織生検が可能であるが^{5,6)}、本症例のように膀胱へ向けて嚢胞が進展している症例では、経腔的アプローチも困難と考えられた。そこで、深部到達、拡大視野で精緻な操作が可能な腹腔鏡が有用であると判断した。腹腔鏡下仙骨腔固定術における膀胱腔間隙の剥離手技を用いて組織生検を行い、良性腫瘍であるGartner管嚢胞と診断することができた。近年、Gartner管嚢胞の診断、治療に腹腔鏡アプローチが有用であったとの報告がみられるようになってきた(表)⁷⁻¹⁰⁾。腔壁腫瘍は骨盤底深部に発生する症例もあり、開腹、経腔生検が困難な部位であれば、本症例のように腹腔鏡によるアプローチも選択肢の一つとして考慮される。

Gartner管嚢胞に対するテトラサイクリン注入療法に関しては、過去に1件の報告があるのみである。Abd-RabboらはGartner管嚢胞15症例に対してテトラサイクリン注入療法を施行し、全症例で嚢胞が消失または縮小し、合併症はなかったと報告している(Sida Niuら²⁾のレビューにおけるテトラサイクリン注入療法15例に該当)¹¹⁾。本症例では、腹腔鏡下嚢胞生検で診断を確定した後、内容液の再貯留により下部尿路症状の再燃がみられた。嚢胞完全摘出術は尿路損傷のリスクが高く困難と判断し、Abd-Rabboらの報告を参考にし、テトラサイクリン注入療法を施行した。嚢胞サイズは約30%縮小し、自覚症状の軽減が得られた。テトラサイクリンは酸性の薬剤で組織の化学変性を生じる性質があり、頸部リンパ嚢胞や難治性胸水、肝嚢胞などの治療で使用されている^{12,13)}。本

症例でも、嚢胞内へ注入したテトラサイクリンが嚢胞壁を構成する細胞の化学変性により傷害し、分泌能を低下させることにより嚢胞内容液の増加を防ぎ、周囲臓器への圧迫症状を軽減できたと推察する。周囲臓器の圧迫症状があり、嚢胞摘出術が困難なGartner管嚢胞症例において、テトラサイクリン注入療法が有効である可能性がある。

【結 語】

Gartner管嚢胞は稀な骨盤内疾患であるが、適切な診断と治療が求められる。本症例の診療経験より、膀胱腔間隙に嚢胞性病変が存在する症例においては、腹腔鏡下仙骨腔固定術で行われる膀胱腔間の剥離手技がアプローチの選択肢の一つとして考慮される。また、外科的切除が困難、再発するGartner管嚢胞の治療として、テトラサイクリン注入療法の有用性も示唆された。

すべての著者は開示すべき利益相反はない。

【参考文献】

- 1) Matthew J L, Joseph K VM : Case Report: Gartner's Duct Cyst. Emerg Med News 2011; 33(5): 35.
- 2) Sida Niu, et al.: Gartner's duct cysts: a review of surgical management and a new technique using fluorescein dye. Int Urogynecol J 2020; 33: 55-61.
- 3) Anne-Sophie Bats, et al.: Malignant Transformation of Gartner Cyst. Int J Gynecol Cancer 2009; 19: 1655-1657.
- 4) A J Titman, U Allard : Female adnexal tumours of probable Wolffian origin: an immunohistochemical study comparing tumours, mesonephric remnants

- and paramesonephric derivatives. *Histopathology* 2001; 38: 237-242.
- 5) Adela G Cope, et al.: Clinical Manifestations and Outcomes in Surgically Managed Gartner Duct Cysts. *J Minim Invasive Gynecol* 2017; 24: 473-477.
 - 6) Goncalo Inocencio, et al.: Large Gartner cyst. *BMJ Case Rep* 2013; bcr2012007996.
 - 7) Marco Castagnetti, Marcello Cimador, Enrico De Grazia : Diagnostic laparoscopy in a Gartner's duct cyst. *J Pediatr Urol* 2008; 4: 173-175.
 - 8) 古澤嘉明、己斐秀樹：感染を繰り返し、腹腔鏡下に摘出したGartner嚢胞の一例. *日産婦内視鏡会誌*2010; 26(1): 219.
 - 9) 米田由香里、和田俊朗：腹腔鏡下にGartner管嚢胞を摘出できた一例. *日産婦内視鏡会誌*2011; 27(1): 222.
 - 10) 大橋和明、他：腹腔鏡が有用であった不全中隔子宮に同側の尿路形成不全を伴ったガートナー管嚢胞の1例. *日産婦内視鏡会誌*2018; 34: 395.
 - 11) M.S. Abd-Rabbo, M.A. Atta : Aspiration and tetracycline sclerotherapy: a novel method for management vaginal and vulval Gartner cysts. *Int J Gynaecol Obstet* 1991; 35: 235-237.
 - 12) R M Robinson, H Bolooki : Intrapleural tetracycline for control of malignant pleural effusion: a preliminary report. *South Med J* 1972; 65(7): 847-849.
 - 13) 神野健二、他：肝嚢胞に対する超音波ガイド下塩酸ミノサイクリン注入療法の臨床的検討 -自験2症例からの考察-. *超音波医学* 1992; 19(11): 789-795.