症 例

後腹膜に発生した粘液性囊胞腺腫の1例

日生病院外科, 同 病理部*

大 山 司 宗 田 滋 夫 橋 本 純 平
吉 川 幸 伸 大 嶋 正 人*

後腹膜の粘液性囊胞腺腫に対し外科治療を施行した1例を経験した。症例は20歳, 女性。主訴は右腰部痛, 会陰部痛。超音波, CT にて右後腹膜に囊胞性腫瘤を認め, 上行結腸の外側後腹膜に存在する囊腫との診断の下に摘出術を施行した。囊腫の長径は6cm, 囊胞壁内腔面は凹凸不整であった。内容は黄褐色透明でやや粘稠性を有する液体であった。組織学的には, 内面が Alcian blue 染色にて陽性を示す一層の高円柱上皮で被われた粘液性囊胞腺腫であった。われわれが検索した範囲内では後腹膜に発生した粘液性囊胞腺腫または腺癌の報告例は海外および本邦で腺腫9例, 腺癌15例で, これらを総覧すると, 摘出生検以外の手段での両者の鑑別は困難と考えられる。以上, 思春期以降の女性で, 後腹膜に他臓器と連続性のない囊胞性疾患を認めた場合, 粘液性囊胞腺腫の可能性を考慮し, 速やかに摘出するべきと考えられる。

索引用語: 後腹膜, 囊腫, 粘液性囊胞腺腫

緒 言

後腹膜より発生する囊胞性腫瘤は稀なものとしてい。われわれは後腹膜の粘液性囊胞腺腫の1例に対し外科治療を行ったので, 後腹膜由来の囊胞性腫瘤, 特に粘液性囊胞腺腫および腺癌についての文献的考察を加え報告する。

症 例

症例: 20歳, 女性。

主訴: 右腰部痛, 会陰部痛。

家族歴および既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1993年頃より右腰部痛および会陰部痛を訴えていた。1995年2月頃より疼痛が増強し, 当院産婦人科を受診し骨盤内を精査したところ右後腹膜に囊胞性腫瘤を認めたため, 摘出目的にて当科を受診した。

入院時現症: 身長160cm, 体重45kg, 血圧102/78 mmHg, 栄養状態良好。結膜に貧血・黄疸なし。腹部は平坦かつ柔軟で圧痛なく, 右上前腸骨棘直上に鶏卵大, 弾性硬で若干の可動性を有する腫瘤を触知した。

検査成績: 末梢血液像, 血液生化学検査ならびに腫瘍マーカーに異常はなかった。腹部単純X線像では異常を認めなかった。腹部CT検査にて, 右下腹部で上

図1 腹部CT像: 右下腹部, 上行結腸の外側に接して, 直径3cmの円形で均一な low density の腫瘤(矢印)が観察された。辺縁は明瞭, 輪郭は整で, 結節性の病変は指摘されなかった。

行結腸の外側に接するように直径3cmの円形の均一な low density の腫瘤が指摘された(図1)。超音波検査では, 均一な低エコーの腫瘤であった(図2)。その他, 肝, 胆, 脾, 腎, 子宮および付属器に異常を認めなかった。注腸透視上, 上行結腸壁が腫瘤により内方に圧排されている像が観察された。

以上より, 上行結腸の外側後腹膜に存在する囊腫と診断し摘出術を施行した。

手術: 右傍腹直筋部の皮膚に縦切開を行い腹膜に達した。腹膜と横筋筋膜との間を剥離し後腹膜腔に達す

図2 腹部超音波像：右下腹部に長径6cmの均一な低エコーの腫瘤を認めた。後方のエコー輝度が上昇し、cystic patternを呈していた。結節性の病変は指摘されなかった。

図3 切除標本内面：嚢胞壁の内腔面は凹凸不整であった。

ると、脂肪組織に被われた鶏卵大の嚢腫が存在した。嚢腫は、他臓器あるいは神経・脈管との癒着はなかったが、腹膜の一部と強固に癒着しており、これの剥離

図4 HE染色：100倍。嚢胞壁には一層の高円柱上皮よりなる大小の腺管の増生を認め、上皮細胞は一層の底在性の核を有し、異型を示す細胞は観察されなかった。

を試みると嚢腫壁を損傷する危険があったため、これを合併切除した。腹膜を切除した欠損部より虫垂ならびに上行結腸が観察されともに異常を認めなかったが、将来虫垂炎を発症した際の診断ならびに治療の困難さを想定し、虫垂切除を施行した。

切除標本肉眼所見：嚢腫は卵円形で大きさが $6 \times 3 \times 3$ cm、薄い被膜に被われ一部で腹膜との強い癒着を認めた。内容は黄褐色透明でやや粘稠性を有する液体であった。嚢胞壁の内腔面は凹凸不整で白色を呈していた(図3)。嚢腫に他臓器の組織を認めなかった。

病理組織学的所見：嚢胞の内腔面の大部分は一層の高円柱上皮で被われ、異型の乏しい底在性の核を有していた(図4)。嚢胞壁は硝子変性を伴う線維性結合組織よりなり、大小腺管の増生巣が散見された。上皮細胞の胞体は、アルシアン・ブルー染色にて陽性を示し、酸性ムコ多糖類の存在が示唆された。ごく一部の上皮細胞の胞体にCEA陽性像を認めた。嚢腫に明らかに他臓器由来と考えられる組織を認めなかった。

以上より、後腹膜由来の粘液性嚢胞腺腫と診断した。

術後経過：経過良好であり、術後8日目に退院した。会陰部痛は持続しているが、右腰部痛は消失し、現在外来にて経過観察中である。

考 察

後腹膜に発生した粘液性嚢胞腺腫または腺癌の報告例は稀である。われわれが検索した範囲内では、海外および本邦で腺腫9例^{1)~9)}、腺癌15例^{6)8)10)~19)}が報告されている。これらの症例を総覧すると(表1, 2)、ほとんどが女性に発症し、発症年齢については腺腫(39.8 ± 12.9 歳, 19~58歳)および腺癌(45.7 ± 14.3 歳,

表1 後腹膜粘液性囊胞腺腫の報告例

腺 腫						
著者名(発表年)	年齢 ^{a)}	性別	初発症状	術前診断	施行術式	腫瘍最大径 (cm) ^{b)}
Howarth(1950)	37	女	腹部膨満感	囊 胞	摘 出	15
Nichols(1951)	36	女	腹 痛	腹部腫瘍	摘 出	10
Kalani(1959)	47	女	腹部膨満感	腹膜囊胞	摘出, 下行結腸合併切除	14
Fearn(1969)	44	女	腹部不快感	腹部腫瘍	摘 出	30
Williams(1971)	26	女	な し	囊 胞	摘 出	22
Banerjee(1988)	58	女	な し	囊 胞 ^{c)}	摘出, 右結腸切除	7
Pennell(1989)	19	女	な し	腸間膜囊胞 ^{c)}	摘 出	10
Melen(1991)	35	女	腹 痛	囊 胞 ^{c)}	摘 出	記載なし
Holder(1993)	56	女	嘔 吐	良性腸間膜囊腫 ^{c)}	摘 出	14

a) 平均39.8±12.9歳 b) 平均15.3±7.46cm c) 診断に超音波またはCTが用いられた

表2 後腹膜粘液性囊胞腺癌の報告例

腺 癌							
著者名(発表年)	年齢 ^{a)}	性別	初発症状	術前診断	施行術式	腫瘍最大径 (cm) ^{b)}	再発
Roth(1977)	48	女	腹部膨満感	囊 胞	摘 出	記載なし	+5ヵ月後
Storch(1980)	17	女	な し	囊胞(結節 ^{d)} 有 ^{c)}	摘 出	17	—
Fujii(1986)	69	女	腹部膨満感	囊 胞 ^{c)}	摘出, 子宮右卵巢合併切除	23	—
永田(1987)	44	女	腹 痛	囊胞(結節 ^{d)} 有 ^{c)}	摘 出	12	—
Banerjee(1988)	26	女	腹 痛	囊 胞 ^{c)}	摘出, 下行結腸左卵巢合併切除	11	+4年後
Banerjee(1988)	47	女	な し	囊 胞 ^{c)}	摘出, 脾左副腎合併切除	13	記載なし
Nelson(1988)	35	女	な し	囊胞(結節 ^{d)} 有 ^{c)}	摘 出	20	—
千田(1990)	42	女	な し	囊胞(結節 ^{d)} 有 ^{c)} ^{e)}	摘 出	11	記載なし
Park(1991)	40	女	腹 痛	囊 胞 ^{c)}	摘 出	24	—
Soendergaard(1991)	37	女	体重増加	囊胞(結節 ^{d)} 有 ^{c)}	摘出, 子宮左卵巢合併切除	10	—
Melen(1991)	75	女	腹 痛	囊 胞 ^{c)}	摘 出	5	+8ヵ月後
Motoyama(1994)	42	女	な し	囊胞腺腫 ^{c)f)}	摘 出	11	記載なし
Motoyama(1994)	63	男	腹 痛	囊 胞 ^{c)f)}	摘 出	6	記載なし
Tenti(1994)	46	女	腹部腫瘍	中皮性囊腫 ^{c)e)}	摘 出	20	—
Tenti(1994)	45	女	腹痛腫瘍	囊胞(結節 ^{d)} 有 ^{c)}	摘 出	20	—

a) 平均45.7±14.3歳 b) 平均15.1±6.04cm c) 診断に超音波またはCTが用いられた

d) 囊胞壁内結節 e) CA125陽性 f) 囊胞内液細胞診施行

17～75歳)の間に差を認めなかった。初発症状については、腺腫、腺癌ともに腹部膨満や腹痛等の腹部症状が多いが、無症状の例も腺腫、腺癌を問わず存在する。腫瘍マーカーが異常値を示したのは、腺癌における1例(CA125)のみであった。術前の画像診断では、特に超音波ならびにCTが有用である。これらの検査上、囊胞壁に結節性の部分を認めた症例はすべて悪性であったが、結節性病変を指摘し得なかったにも関わらず、術後悪性と判明した症例が8例存在した。術前の囊胞内液細胞診は3例のみで実施されたものの、悪性細胞は検出されなかった。術式は、基本的には腫瘍のみの摘出であった。腺腫、腺癌とも周囲臓器を合併切除している症例も存在するが、組織学的には浸潤して

おらず、囊腫の単独切除が可能であったと考えられる。摘出された囊腫の長径は、腺腫で15.3±7.46cm(7～30cm)、腺癌で15.1±6.04cm(5～24cm)と両群間に有意差は認められなかった。腺癌については、術後経過の記載されている11例中、3例に再発を認めた。

後腹膜の囊胞性疾患に関して、大井らは本邦での報告例を皮様囊腫、リンパ囊腫、漿液性囊腫、血液囊腫およびその他の囊腫に分類し総括している²⁰⁾(本症例のごとき粘液性囊胞腺腫は、漿液性囊胞として分類されている)。それを検討すると、最も頻度の高いのはリンパ囊腫であるが、その大きさあるいは発症年齢では各種間に差を認めない。ただし、漿液性囊腫以外のは乳児期から小児期にも観察されるが、漿液性囊腫

の発症は、分娩障害のために発見された生後27日の新生児を除いてはすべて思春期以降である。画像診断上、皮様嚢腫についてはその形態から他との鑑別が可能であるが、リンパ嚢腫、漿液性嚢腫ならびに血液嚢腫の3者間の鑑別は困難である²¹⁾。

以上より考察すると、思春期以降の女性で、後腹膜に他臓器と連続性のない嚢胞性疾患を認めた場合、その大きさ、結節性病変の有無に関わらず、粘液性嚢胞腺癌の可能性を考慮し、速やかに摘出するべきと考えられる。

粘液性嚢胞腺腫および腺癌の発生母地については中皮の迷入とそれに続く化生、または異所性の卵巣由来が考えられている²²⁾。本例では嚢腫に卵巣組織の遺残を認めなかったことから、前者の可能性が高いと考えられる。

結 語

後腹膜由来と考えられる粘液性嚢胞腺腫の1手術例を経験し、報告した。

文 献

- 1) Howarth VS: Retroperitoneal cystic adenoma. *Br J Surg* 37: 329—330, 1950
- 2) Nichols DH, Postoloff AV: Congenital ectopic ovary. *Am J Obstet Gynecol* 62: 195—198, 1951
- 3) Kalani HL, Kapp RW, Eitzen O: Primary retroperitoneal pseudomucinous cyst. *Am J Surg* 98: 750—752, 1959
- 4) Fearn CB: Retroperitoneal pseudomucinous cystadenoma of the ovary. *Br J Surg* 56: 153—155, 1969
- 5) Williams PP, Gall SA, Prem KA: Ectopic mucinous cystadenoma. A case report. *Obstet Gynecol* 38: 831—837, 1971
- 6) Banerjee R, Gough J: Cystic mucinous tumours of the mesentery and retroperitoneum: Report of three cases. *Histopathology* 12: 527—532, 1988
- 7) Pennell TC, Gusdon JP Jr: Retroperitoneal mucinous cystadenoma. *Am J Obstet Gynecol* 160: 1229—1231, 1989
- 8) Melen K, Sandermann J, Boiesen P, et al: Retroperitoneal malignant cyst. *Eur J Surg* 157: 621—622, 1991
- 9) Holder CA, Sistrom CL, McKinney CD, et al: Retroperitoneal cyst in an adult woman. *Invest Radiol* 28: 868—870, 1993
- 10) Roth LM, Ehrlich CE: Mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum. *Obstet Gynecol* 49: 487—488, 1977
- 11) Storch MP, Raghavan U: Mucinous cystadenocarcinoma of retroperitoneum. *Conn Med* 44: 140—141, 1980
- 12) Fujii S, Konishi I, Mori T, et al: Mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum: A light and electron microscopic study. *Gynecol Oncol* 24: 103—112, 1986
- 13) 永田二郎, 山内晶司, 高木 弘他: 後腹膜にみられた mucinous cystadenoma of borderline malignancy の1例. *日外会誌* 88: 489—492, 1987
- 14) Nelson H, Benjamin B, Alberty R: Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma. *Cancer* 61: 2117—2121, 1988
- 15) 千田 匡, 渡辺英伸, 武藤輝一他: 後腹膜原発粘液性嚢胞腺癌の1例. *癌の臨* 36: 205—210, 1990
- 16) Park R, Han KC, Huh MH, et al: A primary mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum. *Gynecol Oncol* 42: 63—67, 1991
- 17) Soendergaard G, Kaspersen P: Ovarian and extraovarian mucinous tumors with solid mural nodules. *Int J Gynecol Pathol* 10: 145—155, 1991
- 18) Motoyama T, Chida T, Watanabe H, et al: Mucinous cystic tumor of the retroperitoneum. A report of two cases. *Acta Cytol* 38: 261—266, 1994
- 19) Tenti P, Tateo CS, Durola R: Primary mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum: Two cases. *Gynecol Oncol* 55: 308—312, 1994
- 20) 大井鉄太郎, 松岡敏彦, 鈴木三郎: 後腹膜嚢腫の1例および本邦後腹膜嚢腫の統計的観察. *臨泌* 28: 521—528, 1974
- 21) 許斐康熙, 萱島孝二: 後腹膜の外科的疾患. 木本誠二, 和田達雄 他編, 新外科学大系28, 中山書店, 東京, 1988, p119—160
- 22) Rosai J: Peritoneum, omentum, mesentery and retroperitoneum. Ed. by Rosai J. *Ackerman's Surgical Pathology*. Seventh edition, CV Mosby, St Louis, 1989, p308—312

A MUCINOUS CYSTADENOMA ORIGINATED FROM RETROPERITONEUM
—A CASE REPORT—

Tsukasa OYAMA, Shigeo SOUDA, Junpei HASHIMOTO, Yukinobu YOSHIKAWA
and Masato OHSHIMA*

Departments of Surgery and Pathology*, Nissei Hospital

We report a case of mucinous cystadenoma in the retroperitoneum undergoing surgical treatment. A 20-year-old woman was admitted to the hospital because of right lumbar pain and perineum pain. Ultrasonography and computed tomography showed a cystic mass in the retroperitoneum of the right side of the abdomen, leading diagnosis of cyst located in the retroperitoneum lateral to the ascending colon. The cyst was removed intact and without excising any other organ. The excised cyst was 6 cm in the maximum diameter, and included lucent, faintly viscous, and yellow-brown fluid. Histological finding led us to make a diagnosis of mucinous cystadenoma originated from the retroperitoneum; one-layer of tall columnar epitheliums, positive for Alcian blue stain, comprised inner surface of the cyst wall. In a review of the Japanese literature, there were 9 cases of mucinous cystadenoma and 15 cases of mucinous cystadenocarcinoma. These reports indicate that it is difficult to determine between malignant and benign without excisional biopsy. We conclude that when a woman in or older than puberty presents with retroperitoneal cystic disease associated with no other organ, it is necessary to excise the cystic mass because of the possibility of mucinous cystadenocarcinoma.