

腹腔鏡下に摘出し得た後腹膜ミュー管囊胞の1例

滋賀医科大学 産科学婦人科学講座¹⁾
 兵庫県立尼崎総合医療センター 産婦人科²⁾
 長浜赤十字病院 産婦人科³⁾

中村 暁子¹⁾ 高橋 顕雅¹⁾ 堀内 辰郎²⁾ 村頭 温³⁾
 北澤 純¹⁾ 信田 侑里¹⁾ 木村 文則¹⁾ 村上 節¹⁾

概 要

ミュー管囊胞は泌尿生殖器系囊胞の一種であり、後腹膜腔に発生することは非常に稀と言われている。今回、右後腹膜腔に発生した15cm大のミュー管囊胞を、腹腔鏡下に摘出し得た症例を経験したので報告する。

術前の画像診断では、腫瘍が後腹膜腔に位置していることが示唆された。囊胞は単房性で壁が薄く、内部に充実成分を認めず、良性腫瘍の可能性が高いと判断し、腹腔鏡下手術を選択した。腫瘍は後腹膜脂肪組織内に位置しており、周辺臓器との交通は認めなかった。腫瘍内容液の除去および核出操作にはダブルバルーンカテーテルの一種であるS.A.N.D.バルーンカテーテル[®]を使用した。今回の方法を用いることで、腫瘍内容液の漏出を防ぎながら、囊胞壁を残存させることなく摘出することが可能であった。術後の病理組織学的診断はミュー管囊胞であった。本症例の術後経過は良好で、現時点で再発徴候を認めていない。

後腹膜ミュー管囊胞では、囊胞径が10cmを超える場合においても、内容液の除去方法や剥離操作を工夫することで腹腔鏡下手術が選択肢の一つになり得ることが示唆された。

Key words: ミュー管囊胞、後腹膜囊胞、腹腔鏡下手術

緒 言

ミュー管囊胞は、男性の骨盤内や女性の膈壁に好発する囊胞性腫瘍で、後腹膜腔に発生することは非常に稀と言われている。また、特徴的な画像所見に乏しく、術前の質的診断は困難であるため、穿刺・吸引や開窓術よりも囊胞摘出術が推奨されている。今回、後腹膜腔に発生した15cm大のミュー管囊胞を、腹腔鏡下に摘出した症例を経験したので報告する。なお、症例報告については患者から文書による同意を得た。

症 例

49歳0妊0産

主訴：腹部膨満感

既往歴：不妊治療中のホルモン補充

家族歴：特記事項なし

現病歴：半年前からの腹部膨満感を主訴に近医を受診した。経腹超音波検査で右側腹部に長径15cmの囊胞を指摘され、精査のため当院を紹介受診された。

現症：身長161.0cm 体重51.2kg 体温36.3℃

血圧117/71mmHg 脈拍数60/min

血液生化学検査：特記すべき異常所見を認めず、腫瘍マーカーもCEA:4.5ng/mL, CA19-9:1U/mL, CA125:8U/mLと正常範囲であった。

画像所見：右腎下極のやや尾側に15×11×7.5cmの囊胞性病変を認めた(図1)。肝下縁・十二指腸・右腎に接し、上行結腸を腹側に圧排する所見から、後腹膜腔に位置すると考えられた。単房性で壁は薄く、境界明瞭・辺縁平滑で、壁肥厚や充実部は認めず、良性腫瘍の可能性が高いと判断し、腹腔鏡下囊胞摘出術を施行した。



図1 腹部CT検査所見

右腎下極のやや尾側に15×11×7.5cmの単房性囊胞を認め、肝下縁・十二指腸・右腎に接し、上行結腸を腹側に圧排する所見から、後腹膜腔に位置すると考えられた。

術中所見：術前に右尿管が腫瘍近傍を走行していることが予想されたため、右尿管ステントを留置した後に腹腔鏡手術を開始した。

体位は仰臥位とし、全身麻酔下に手術を開始した。臍部に12mmトロッカーをオープン法で留置し、気腹した後に下腹部正中および左右に5mmトロッカーを留置した。腫瘍は後腹膜脂肪組織内に位置し、周辺臓器との交通は認めなかった。子宮および両側付属器は正常大であった。周囲組織から腫瘍を剥離する過程で、視野確保のためS.A.N.D.バルーンカテーテル[®]（八光メディカル、長野、日本）を用いて嚢胞を穿刺し、内容液を吸引した（図2）。穿刺部からの内容液漏出を防ぐため、内容液吸引後もバルーンを膨らませたまま留置した。腫瘍周囲は疎な結合組織で構成されており円滑に剥離可能で、嚢胞壁を残存させることなく腫瘍を摘出した。

病理組織診断：腫瘍は、無色透明で漿液性の内容液を含む単房性嚢胞で、肉眼的にも壁肥厚や充実部は認めなかった。嚢胞壁は単層立方上皮および線毛を有する単層円柱上皮で構成され、淡明な細胞質を有する細胞も混在しており、形態学的には卵管上皮に類似していた。免疫組織化学染色では、ER陽性・PgR陽性・CK7陽性・CK20陰性・calretinin陰性であり、また上皮の核に一致してPAX8が弱陽性であったことから、ミュラー管嚢胞と診断された（図3）。

術後経過は良好で、再発徴候を認めず経過している。

考 察

ミュラー管嚢胞が後腹膜腔に発生することは非常に稀で、その頻度は10万人に1人程度と言われている¹⁾。ミュラー管は胎生6週頃に中腎の外側に現れ、女性では卵管、子宮、膈上部に分化する。男性では胎生精巣から分泌されるMullerian inhibiting factorの作用で退化し、頭側では精巣垂、尾側では前立腺小室として遺残する。前立腺小室が異常に拡張したものがミュラー管嚢胞と呼ばれ、剖検において男性骨盤内に0.7~1%の頻度で認められるとの報告がある²⁾。女性での好発部位は、膈の側壁および後壁で、その発生機序は明確ではないが、主に三つの説が唱えられている。

- ①迷入ミュラー管組織が肥満やホルモン療法に起因する過剰なエストロゲンの刺激を受けて成長する³⁾。
- ②体腔上皮や腹膜が陥入・遊離して様々な上皮に分化・異形成する⁴⁾。
- ③月経血の逆流・子宮内膜症・骨盤内手術による異所性子宮内膜組織に由来する⁵⁾。

肥満体型で月経不順の女性に多いとの報告⁶⁾や、妊娠の度に嚢胞の増大傾向を認めた報告⁷⁾がある。

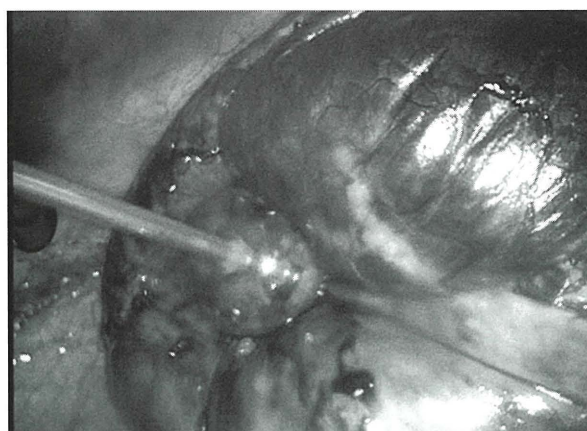


図2 術中所見

S.A.N.D.バルーンカテーテル[®]を用いて嚢胞を穿刺し、内容液を吸引した。バルーンを拡張させたまま剥離操作を進めることで、内容液の漏出を防ぐことができた。

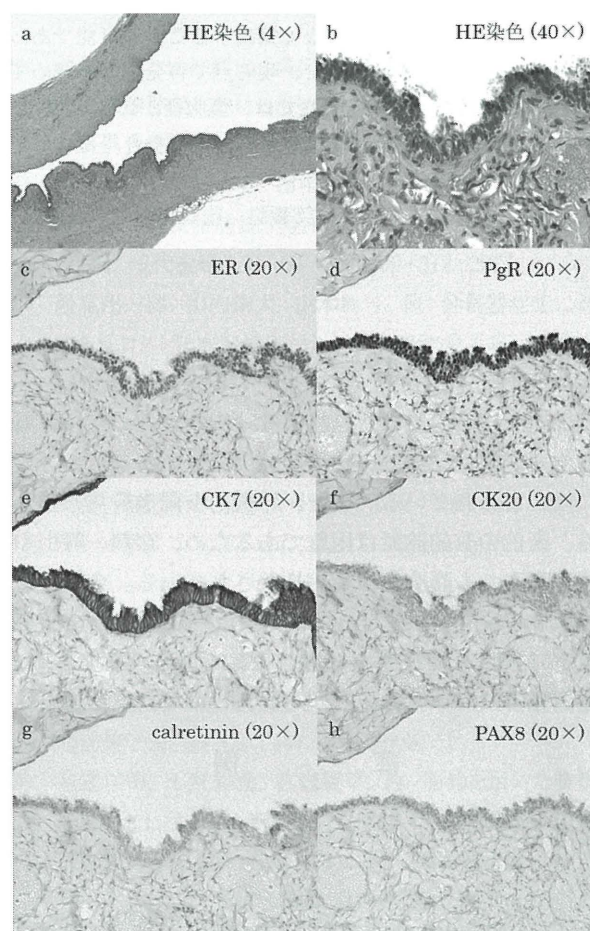


図3 病理組織学的所見

a, b: 嚢胞壁は単層立方上皮および線毛を有する単層円柱上皮で構成され、淡明な細胞質を有する細胞も混在しており、形態学的には卵管上皮に類似していた。c, d, e, f, g, h: ER陽性・PgR陽性・CK7陽性・CK20陰性・calretinin陰性であり、また上皮の核に一致してPAX8が弱陽性であった。

本症例では、体格は痩せ型であり、骨盤内手術の既往や子宮内膜症病巣は認めなかったが、過去に不妊治療歴があり、ホルモン補充を行っていた既往があり、本疾患に関与している可能性が考えられた。

後腹膜原発のミュラー管嚢胞の現在までの報告は22例⁸⁾⁻²⁷⁾であり、全例で外科的治療が選択されていた(表1)。後腹膜嚢胞は、CTなどの画像診断で腫瘍の存在や位置は容易に確認できるが、鑑別診断を行ううえで特徴的な所見に乏しいため、術前の正診率は25%と低く、術前の質的診断は困難とされている²⁸⁾。術前の質的診断が難しいこと、開窓術・穿刺吸引術など姑息的治療後の感染や再発率の高さから、後腹膜嚢胞は嚢胞壁の残存や内容液の漏出なく摘出することが望ましいとされている²⁹⁾。また、後腹膜嚢胞は壁が薄く、周囲との癒着が粗で比較的容易に剥離可能な症例が多く、鏡視下手術のよい適応と考えられている³⁰⁾。しかし、過去の後腹膜ミュラー管嚢胞の報告で、腹腔鏡下手術を施行されたのは5例のみであった(表2)。自験例では術前に良性の嚢胞性腫瘍であることが示唆されたため、腹腔鏡下手術を施行したが、腫瘍と周囲組織との癒着はなく容易に剥離可能であり、嚢胞壁を残存させることなく摘出が可能であった。

さらに、嚢胞性腫瘍を腹腔鏡下に摘出する場合、術中の視野確保および回収のために工夫が必要である。

特に嚢胞径が大きい腫瘍ほど、その必要性は高くなると考えられる。自験例では、嚢胞径が15cmと大きく剥離操作にも支障をきたすと考えられたため、外側からの回盲部授動操作を行い、上行結腸肝彎曲部まで癒合筋膜下を剥離し、腫瘍をある程度露出させた後、S.A.N.D.バルーンカテーテル[®]で内容液を吸引し、最終的に腫瘍を核出した。過去の文献においても、22cmの嚢胞に対して、まず一部のみを剥離して嚢胞壁を露出させたうえで、胆嚢穿刺針を用いて内容液吸引後に穿刺口を結紮し、残りの剥離操作を進めたとの報告がある²⁶⁾。10cm未満の嚢胞では、核出操作後に回収袋内で嚢胞内容液を穿刺・吸引し腹腔外へ回収した報告も認めたが、良好な視野を確保し、術中破綻を防ぐ観点から、嚢胞の大きさによっては、核出操作前に内容液を除去する工夫が必要であると考えられた。

今回、後腹膜腔原発の稀なミュラー管嚢胞の症例を経験した。また、ダブルバルーンカテーテルを用いることで、15cm大の後腹膜嚢胞を腹腔鏡下に摘出することができた。本症例では、術中・術後合併症や再発徴候も認めておらず、後腹膜ミュラー管嚢胞では、嚢胞径が大きい場合においても、内容液除去方法を工夫することで腹腔鏡下手術が選択肢の一つとなり得ることが示唆された。

表1 後腹膜ミュラー管嚢胞の報告例

症例番号	報告者	発表年	年齢(歳)	性別	主訴	腹部手術歴・ホルモン療法歴	嚢胞径(cm)	アプローチ方法
1	Steinberg L	1970	19	女	腹部腫瘍	ホルモン療法(月経不順)	45	開腹
2	Harpas N	1987	48	女	なし	なし	23	開腹
3	de Peralta MN	1994	68	女	なし	子宮付属器切除	8	開腹
4	de Peralta MN	1994	45	女	なし	付属器切除	15	開腹
5	de Peralta MN	1994	73	女	腹部膨満感	子宮付属器切除	17	開腹
6	Lee J	1998	47	女	腹部膨満感	ホルモン療法(月経不順)	25	開腹
7	Konishi E	2003	35	女	腹部腫瘍	なし	20	開腹
8	Yohendran J	2004	42	女	腹部腫瘍	なし	13	開腹
9	Shayan H	2004	36	女	腹部不快感	なし	12	開腹
10	唐崎	2005	83	女	左側腹部痛	帝王切開・子宮摘出	7	開腹
11	Ray M	2005	53	女	腹部膨満感	なし	16	腹膜外法
12	Park SC	2006	38	女	なし	腎移植	手拳大	開腹
13	Kassab A	2007	80	女	腹部不快感	なし	35	開腹
14	原田	2007	30	女	腹部腫瘍	なし	17	開腹
15	金子	2009	67	女	なし	腹腔鏡下胆嚢摘出	6	腹腔鏡
16	王	2013	35	女	腹部不快感・嘔気	なし	6.4	腹腔鏡+小開腹
17	神田	2014	51	女	なし	虫垂炎・帝王切開・子宮摘出	8	腹腔鏡
18	Sarkar D	2014	34	女	腰部部痛	なし	7.5	腹腔鏡
19	林	2015	51	女	腹部腫瘍	なし	7	開腹
20	辻尾	2016	45	女	腹部腫瘍	子宮摘出	20	開腹
21	梅邑	2016	43	女	腹部膨満感	子宮筋腫核出	22	腹腔鏡
22	甲谷	2018	57	女	外陰部掻痒感	なし	14	腹腔鏡
23	自験例	2019	49	女	腹部膨満感	ホルモン療法(不妊治療)	15	腹腔鏡

表2 後腹膜ミュラー管嚢胞に対して腹腔鏡下手術を施行された症例

症例番号	報告者	発表年	年齢(歳)	性別	嚢胞径(cm)	回収方法
15	金子	2009	67	女	6	(記載なし)
17	神田	2014	51	女	8	回収袋内で嚢胞穿刺・内容液吸引(嚢胞摘出術後)
18	Sarkar D	2014	34	女	7.5	嚢胞穿刺・内容液吸引(嚢胞摘出術後)
21	梅邑	2016	43	女	22	胆嚢穿刺針で内容液吸引・穿刺口を結紮(嚢胞摘出術前)
22	甲谷	2018	57	女	14	(記載なし)
23	自験例	2019	49	女	15	S.A.N.D.バルーンカテーテル [®] で内容液吸引(嚢胞摘出術前)

文 献

- 1) de Perrot M, Bründler M, Tötsch M, et al.: Mesenteric cysts. Toward less confusion? *Dig Surg*, 17(4): 323-328, 2000
- 2) 狩野武洋, 伊野部拓治, 林秀樹, 他: ミューラー管嚢胞の1例. *泌外*, 13(6): 799-801, 2000
- 3) Lee J, Song SY, Park CS, et al.: Müllerian cysts of the mesentery and retroperitoneum: a case report and literature review. *Pathol Int*, 48(11): 902-906, 1998
- 4) Lauchlan SC: The secondary müllerian system revisited. *Int J Gynecol Pathol*, 13(1): 73-79, 1994
- 5) de Peralta MN, Delahoussaye PM, Tornos CS, et al.: Benign retroperitoneal cysts of müllerian type: a clinicopathologic study of three cases and review of the literature. *Int J Gynecol Pathol*, 13(3): 273-278, 1994
- 6) Yang DM, Jung DH, Kim H, et al.: Retroperitoneal cystic masses: CT, clinical, and pathologic findings and literature review. *Radiographics*, 24(5): 1353-1365, 2004
- 7) 白石裕子, 片渕秀隆, 大重明広, 他: 2回の妊娠中に増大を示した腔Müller管嚢胞の1例. *日婦腫瘍会誌*, 17(1): 63-68, 1999
- 8) Steinberg L, Rothman D, Drey NW.: Müllerian cyst of the retroperitoneum. *Am J Obstet Gynecol*, 107(6): 963-964, 1970
- 9) Harpaz N, Gellman E.: Urogenital mesenteric cyst with fallopian tubal features. *Arch Pathol Lab Med*, 111(1): 78-80, 1987
- 10) de Peralta MN, Delahoussaye PM, Tornos CS, et al.: Benign retroperitoneal cysts of Müllerian type: a clinicopathologic study of three cases and review of the literature. *Int J Gynecol Pathol*, 13(3): 273-278, 1994
- 11) Lee J, Song SY, Park CS, et al.: Müllerian cysts of the mesentery and retroperitoneum: a case report and literature review. *Pathol Int*, 48(11): 902-906, 1998
- 12) Konishi E, Nakashima Y, Iwasaki T: Immunohistochemical analysis of retroperitoneal Müllerian cyst. *Hum Pathol*, 34(2): 194-198, 2003
- 13) Yohendran J, Dias MM, Eckstein R, et al.: Benign retroperitoneal cyst of Müllerian type. *Asian J Surg*, 27(4): 333-335, 2004
- 14) Shayan H, Owen D, Warnock G: Surgical images: soft tissue Müllerian cyst of the upper abdomen: a lesion mimicking pancreatic cystadenoma. *Can J Surg*, 47(5): 369-371, 2004
- 15) 唐崎秀則, 稲垣光裕, 石崎彰, 他: 後腹膜Müller管嚢胞の1例. *手術*, 59(11): 1757-1760, 2005
- 16) Ray M, Bose B, Honore L.: A 53-year-old woman with abdominal pain and fullness. *CMAJ*, 172(2): 184, 2005
- 17) Park SC, Kim TH, Moon IS, et al.: A case of benign retroperitoneal cyst of Müllerian type in kidney transplant patient. *Transplant Proc*, 38(7): 2086-2087, 2006
- 18) Kassab A, El-Biary G, Clark J, et al.: Unusual presentation of 22-kilogram retroperitoneal müllerian serous cystadenoma. *Gynecol Oncol*, 104(1): 257-259, 2007
- 19) 原田勝久, 野口剛, 菊池隆一, 他: 後腹膜Müller管嚢胞の1例. *日臨外会誌*, 68(4): 1017-1021, 2007
- 20) 金子剛, 西本紘嗣郎, 矢内原仁, 他: 腹腔鏡下に切除した後腹膜Müller管嚢胞の1例. *泌紀*, 55(12): 753-756, 2009
- 21) 王聡, 安永豊, 岩佐葉子, 他: 後腹膜Müller管嚢胞の1例. *泌外*, 26(7): 1129-1132, 2013
- 22) 神田裕佳, 増井仁彦, 恵謙, 他: 腹腔鏡下に摘出した後腹膜Müller管嚢胞の1例. *泌紀*, 60(10): 493-496, 2014
- 23) Sarkar D, Gulur D, Patel S, et al.: An unusual presentation of a retroperitoneal cyst. *BMJ Case Rep*, doi: 10.1136/bcr-2014-206284, 2014
- 24) 林忠毅, 矢田達朗, 西脇由朗, 他: 後腹膜原発Müller管嚢胞の1切除例. *日消外会誌*, 48(5): 429-435, 2014
- 25) 辻尾元, 青松直撥, 内間恭武, 他: 急速に増大した後腹膜Müller管嚢腫の1例. *日臨外会誌*, 77(1): 197-203, 2016
- 26) 梅邑晃, 須藤隆之, 中村聖華, 他: 腹腔鏡下切除術を施行した後腹膜原発Müller管嚢胞の1例. *日鏡外会誌*, 21(4): 455-460, 2016
- 27) 甲谷秀子, 松原圭一, 金子久恵, 他: 術後に稀な骨盤内嚢胞性疾患と診断された2例. *日産婦内視鏡会誌*, 34(1): 159-163, 2018
- 28) Kurtz RJ, Heimann TM, Holt J, et al.: Mesenteric and retroperitoneal cysts. *Ann Surg*, 203(1): 109-112, 1986
- 29) Burkett JS, Pickleman J.: The rationale for surgical treatment of mesenteric and retroperitoneal cysts. *Am Surg*, 60(6): 432-435, 1994
- 30) 森山初男, 佐藤哲郎, 野口剛, 他: 腹腔鏡下に切除した後腹膜漿液性嚢胞の1例. *日臨外会誌*, 66(3): 743-746, 2005