

## 膀胱粘膜下に発生した Endosalpingiosis の 1 例

三島 崇生<sup>1</sup>, 原田 二郎<sup>1</sup>, 河 源<sup>1</sup>, 岡田 卓也<sup>2</sup>

<sup>1</sup>大阪府済生会野江病院泌尿器科, <sup>2</sup>神戸市立医療センター中央市民病院泌尿器科

### A CASE OF ENDOSALPINGIOSIS IN SUBMUCOSA OF THE URINARY BLADDER

Takao MISHIMA<sup>1</sup>, Jiro HARADA<sup>1</sup>, Gen KAWA<sup>1</sup>, Takuya OKADA<sup>2</sup>

<sup>1</sup>The Department of Urology, Grace Foundation Osaka Saiseikai Noe Hospital

<sup>2</sup>The Department of Urology, Kobe City Medical Center General Hospital

A 39-year-old woman showed thickening of the bladder wall on magnetic resonance imaging (MRI). Since transurethral resection to the lesion revealed that the histological structure of the lesion was compatible with that of the fallopian tube and endometrium, we considered that the tumor was derived from müllerian tissue. Subsequently, partial cystectomy was performed to remove the tumor. Immunohistochemical examination indicated a diagnosis of endosalpingiosis involving endometriosis. The concept of endosalpingiosis was proposed in 1930, and only 9 cases of urinary bladder endosalpingiosis have been reported worldwide. Surgical procedures such as transurethral resection and partial cystectomy were performed in all reported cases. None of the reported cases, including the present case, showed recurrence. (Hinyokika Kyo 59 : 171-174, 2013)

**Key words :** Endosalpingiosis, Müllerianosis, Submucosal urinary bladder tumor

#### 緒 言

Endosalpingiosis は卵管内膜上皮に類似した腺上皮が異所性に存在するものと定義されており, müllerianosis の 1 類型とされている。一方, 子宮内膜由来を起源とするものは endometriosis と定義される<sup>1)</sup>。

膀胱の endosalpingiosis は, 同部に発生する endometriosis に比較してのその報告例は少なく, われわれが調べた限りは 9 例の報告があるに過ぎない。今回われわれは膀胱粘膜下に発生し, 膀胱部分切除を施行した endosalpingiosis の 1 例を経験した。

#### 症 例

患者 : 39歳, 女性

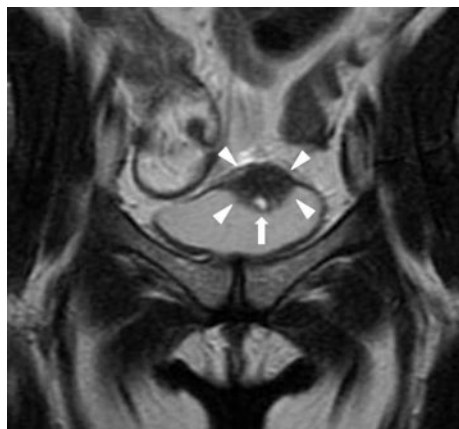
主訴 : 排便困難

既往歴 : 特記すべきことはなし 妊娠・出産なし 腹部外傷歴なし

現病歴 : 2007年排便困難を主訴に近医を受診した。子宮内膜症と診断され, プロゲステロン受容体アゴニストによる内分泌療法が開始された。治療経過中に左卵巣嚢腫および子宮筋腫を指摘され, 2008年11月に精査目的にて当院産婦人科へ紹介となった。骨盤部 MRI 撮影を施行したところ, 膀胱後壁の壁肥厚を指摘され, 当科へ紹介受診となった。

尿検査所見 : RBC : 0~1/HPF, WBC : 5~10/HPF.

血液生化学的所見 : 特記すべき所見認めず。

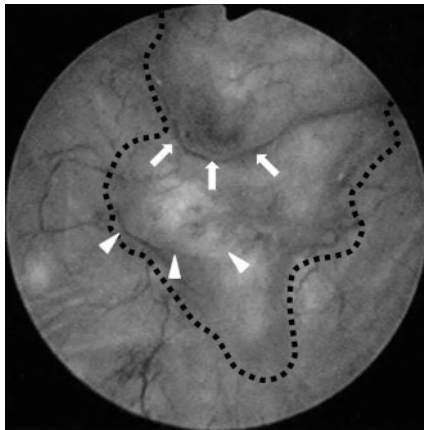


**Fig. 1.** T2-weighted MRI showed a mass with a diameter of 2.5 cm. Part of the thickened wall showed a mosaic pattern of low signal intensity (arrowheads), with high signal intensity in a 2 mm region (arrow).

骨盤部 MRI 所見 : 膀胱後壁に位置する壁肥厚部分について, T1 強調画像では大部分は低信号であったが, 一部で不均一に高信号を呈する部分を認めた。T2 強調画像では, やや非均一な低信号を呈する壁肥厚部分の一部に, 径 2 mm 程度の高信号域が認められた (Fig. 1)。

膀胱鏡所見 : 膀胱後壁に不規則に突出する腫瘤像を認めた。膀胱粘膜には発赤や血管の怒張などは認めなかったが, 粘膜下に存在する暗赤色な部分や乳白色な部分が一部透見された (Fig. 2)。

経過 : MRI 所見および膀胱鏡検査所見から膀胱粘



**Fig. 2.** Cystoscopic examination showed the mass protruding irregularly on the posterior wall of the bladder (dot line). Dark red (arrow) and milky-white lesions (arrowhead) were observed beyond the bladder mucosa, although there was no redness or dilation of vessels on the mucosa.

膜下腫瘍と考えられたが、組織型確認のために2009年1月、腰椎麻酔下に膀胱壁肥厚部分の経尿道的切除を施行した。切除標本の病理組織学検索にて、一層の立方上皮あるいは線毛上皮にて形成される嚢胞様構造が認められた。同部の免疫組織学的検索において、エストロゲンレセプター (ER) は瀰漫性に陽性染色所見が得られ、プロゲステロンレセプター (PR) は巣状の陽性染色所見が認められた。これらの結果から卵管および子宮内膜組織であると判断され、müller管由来の構造物と考えられた。さらには組織内に線毛上皮が確認された事から、卵管由来の endosalpingiosis と考えられた。過去に内分泌療法による治療歴があったにもかかわらず、これらの腫瘍が存在していた事や、子宮筋腫に対する核出術が婦人科で予定されていた事から、これと同時に膀胱部分切除による腫瘍摘除を施行することとした。

術中所見：開腹手術に先行して、碎石位にて経尿道的にレゼクトスコープを用い、膀胱粘膜に切除ラインのマーキングを行った。腫瘍の切除マージンとして1 cmを確保した。腹腔内所見としては、膀胱外に突出する腫瘍性病変は認めなかったが、膀胱頂部を被覆する腹膜と子宮体部前面を覆う腹膜に強固な癒着を認めた。卵管および卵巣などの周囲臓器との癒着は認められなかった。

膀胱内腔を一部開放後、経尿道的に付けておいたマーキングラインを目安に、円状に膀胱壁切開を加え、一部子宮筋腫に接したまま膀胱粘膜下腫瘍を摘出し、引き続いて子宮筋腫を核出した。

病理組織学的検査：腫瘍は膀胱粘膜下層から固有筋層にかけて、子宮内膜間質を伴う子宮内膜腺上皮により形成される組織や、卵管上皮とみられる組織により

形成される嚢胞様構造の混入が認められ、endometriosis や endosalpingiosis が混在した像と考えられた (Fig. 3a)。卵管上皮とみられる上皮細胞には線毛の存在が確認された (Fig. 3b)。先の検討と同様に免疫組織学的検索を行ったところ、ER および PR の陽性染色所見が得られた。一方、子宮内膜組織で染色陽性となるが卵管上皮では染色陰性となる CD10 による免疫染色において陰性染色部分が認められたことから、同部においては卵管由来の endosalpingiosis であると診断しえた (Fig. 3c)。周囲脂肪組織には腫瘍は認められず、隣接する子宮筋腫との連続性も認めなかった。

術後経過：術後10カ月後に施行した膀胱鏡、MRIにて再発は認めていない。

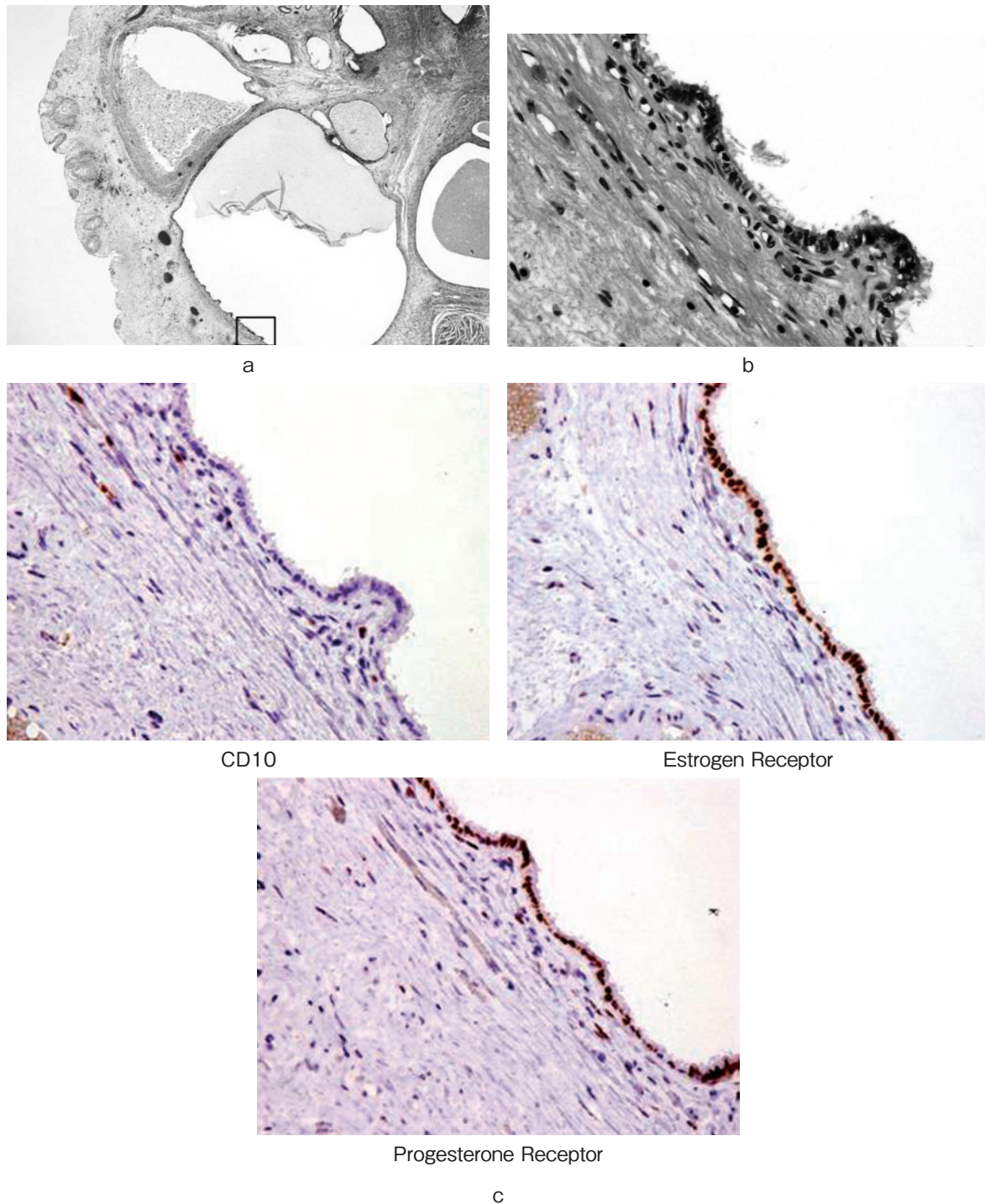
## 考 察

Endosalpingiosis は卵管内膜上皮に類似した腺上皮が異所性に存在するものと定義され、1930年に Sampson らによって初めて報告された<sup>2)</sup>。自覚症状は乏しく、臓腹膜やダグラス窩部分の病理検索の機会に偶発的に見つかることが多い。稀に骨盤壁側腹膜や膀胱・傍大動脈リンパ節・皮膚において endosalpingiosis にて構成される腫瘍形成を認めることがある。

病理組織学的には、腺管構造を形成する線毛上皮が確認され、その上皮が müller 管由来であることを意味する ER および PR について染色陽性となることと、子宮内膜組織で染色陽性となる CD10 が陰性であることが特徴的とされる。腫瘍内には他の müller 管由来の組織である、endometriosis や endocervicosis が混在していることが多く、本症例においても一部で endometriosis の存在が認められた。

Endometriosis などの müller 管由来病変の発生機序としては、発生段階における müller 管由来組織の体腔上皮内への迷入とその増殖による体腔上皮化生説<sup>3)</sup>と、脱落組織の付着による移植説<sup>4)</sup>が唱えられているが、現時点で結論には至っていない。本症例では腫瘍と卵巣や卵管との連続性はなく、膀胱筋層内に病変が存在していたこと、また卵管細胞の播種の原因となるような腹部手術や外傷の既往がないことなどから、発生段階での体腔上皮の迷入が合致しうる説であると考えられた。

膀胱に発生した endosalpingiosis に関しては、1996年に Young によって初めて報告<sup>5)</sup>されて以来、調べた限りでは現在までに9例の報告がある<sup>5-11)</sup>。また、自験例は本邦報告例としては2例目であった。これら報告症例の平均年齢は44歳、腫瘍の大きさは2~4 cmであった。主訴は下腹部違和感や排尿困難が多く、腫瘍存在部位はほとんどの症例で膀胱の頂部から後壁であった (Table 1)。



**Fig. 3.** a: Histopathological examination indicated a mixed structure consisting of endometrial epithelium and fallopian tube-like tissue ( $\times 20$ ). b: High-power magnification of the square field in figure 3a demonstrated tubal type epithelium containing cilia ( $\times 200$ ). c: Immunohistopathological examination indicated positive staining for estrogen and progesterone receptor, and CD10 was negative ( $\times 200$ ).

Endosalpingiosis 自体は臓側腹膜やダグラス窩の病理検索時に偶然発見される事が多い。稀に骨盤壁側腹膜・傍大動脈リンパ節・膀胱・皮膚での腫瘍形成例が指摘されている。膀胱に発生した endosalpingiosis に対する治療として内分泌療法は無効な事が多く<sup>3)</sup>、すべての報告例において経尿道的切除(7例)もしくは膀胱部分切除(3例)が施行されている。Endo-

salpingiosis の再発についての報告はなく、本症例においても術後10カ月後に施行した膀胱鏡、MRI にて再発は認めていない。今後、さらなる endosalpingiosis の症例の蓄積によりその自然史がより明確となれば、組織学的に endosalpingiosis と診断された場合は保存的な経過観察も選択肢となりうるのかも知れない。



**Table 1.** Previously reported cases of urinary bladder endosalpingiosis

症例	著者名	発表年	年齢	自覚症状	サイズ (cm)	部位	治療法	再発
1	Young, et al.	1996	37	下腹部腫瘍	3-4	後壁	TUR	無
2	Young, et al.	1996	44	下腹部違和感	2-3	後壁	TUR	無
3	Young, et al.	1996	46	生理不順	2	後壁	TUR	無
4	Donne, et al.	1998	27	下腹部違和感, 排尿困難	4	不明	TUR	無
5	Arai, et al.	1999	47	偶発	3	後壁	膀胱部分切除	無
6	Jimenez, et al.	2000	38	下腹部違和感, 排尿困難	2	不明	膀胱部分切除	無
7	John, et al.	2002	67	恥骨部痛	2-3	頂部	TUR	無
8	Cortney, et al.	2004	48	不整性器出血	2	後壁	TUR	無
9	Maniar KP, et al.	2009	54	排尿困難	2.5	後壁	TUR	無
10	自験例	2012	39	排便困難	2	後壁	膀胱部分切除	無

## 結 語

膀胱後壁に発生した endosalpingiosis の 1 例を経験した。経尿道的生検にて診断を得、後日膀胱部分切除を施行した。膀胱に発生する endosalpingiosis は稀であり、自験例を含め現在までに 9 例の報告がされている。

## 文 献

- 1) Batt RE, Smith RA, Buck Louis GM, et al.: Müllerianosis. *Histol Histopathol* **22**: 1161-1166, 2007
- 2) Sampson JA: Postsalpingectomy endometriosis (endosalpingiosis). *Am J Obstet Gynecol* **20**: 443-480, 1930
- 3) Sampson JA: The development of the implantation theory for the origin of peritoneal endometriosis. *Am J Obstet Gynecol* **40**: 549-557, 1940
- 4) Lauchlan SC: The secondary müllerian system. *Obstet Gynecol Surv* **27**: 133-146, 1972
- 5) Young RH and Clement PB: Müllerianosis of the urinary bladder. *Mod Pathol* **9**: 731-737, 1997
- 6) Donne C, Vidal M, Buttin X, et al.: Müllerianosis of

the urinary bladder: clinical and immunohistochemical findings. *Histopathology* **33**: 290-292, 1998

- 7) Jimenez-Heffernan JA, Sanchez-Piedra D, Bernaldo de Quiros L, et al.: Endosalpingiosis (müllerianosis) of the bladder: a potential source of error in urinary cytology. *Cytopathology* **11**: 348-353, 2000
- 8) 荒井好昭, 續 真弘, 大久保雄平, ほか: 膀胱粘膜下に発生した Endosalpingiosis の 1 例. *日泌尿会誌* **90**: 802-805, 1999
- 9) Edmondson JD, Vogeler KJ, Howell JD, et al.: Endosalpingiosis of bladder. *J Urol* **167**: 1401-1402, 2002
- 10) Smith C, Sabet L and Izawa JI: Management of endosalpingiosis of urinary bladder. *Urology* **64**: 1031.e15-17, 2004
- 11) Manair KP, Lalir TL, Palese MA, et al.: Endosalpingiosis of the urinary bladder: a case of probable implantative origin with characterization of benign fallopian tube immunohistochemistry. *Int J Surg Pathol* **20**: 1-4, 2009

(Received on August 13, 2012)

(Accepted on October 12, 2012)