

内容液 CA19-9 および CA-125 が高値を呈した 後腹膜漿液性嚢胞の 1 例

小波瀬病院泌尿器科 (部長: 実藤 健)

実 藤 健

RETROPERITONEAL CYSTADENOMA CONTAINING ELEVATED CONCENTRATIONS OF CA125 AND CA19-9 IN THE CYST FLUID: A CASE REPORT

Takeshi SANEFUJI

From the Department of Urology, Obase Hospital

A 67-year-old female presented with left abdominal distension. A huge retroperitoneal cystic mass, measuring over 20 cm in diameter, was found below the left kidney. The cyst was punctured percutaneously, and serous fluid was aspirated. It was noted that the concentrations of CA125 and CA19-9 in the fluid of the cyst were extremely elevated while those in the serum were normal. The cyst was resected easily without any adhesion. Microscopically, the cyst was lined with a mixture of ciliated and cuboidal serous cells and columnal mucinous cells. Immunohistochemical staining of the cyst wall proved positive for CA125 on serous cells, and for CA19-9 on mucinous cells.

(Acta Urol. Jpn. 46: 457-461, 2000)

Key words: Retroperitoneal serous cyst, CA125, CA19-9

緒 言

後腹膜腔に発生する嚢胞は稀な疾患の 1 つで、後腹膜腫瘍全体の 3 ~ 6 % を占めるにすぎない。この中でも漿液性嚢胞は全後腹膜嚢胞の 12 ~ 13 % で、本邦では 1911 年以来 54 例の報告がある。今回われわれは成熟女性に発生した後腹膜漿液性嚢胞の 1 例を経験したが、内容液中 CA125 および CA19-9 が高値を呈し、免疫染色にて両者の局在が証明できた興味ある症例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 67 歳, 女性

主訴: 左下腹部膨満感

既往歴: 20 数年前子宮筋腫にて、付属器を含めて子宮摘除術施行

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1999 年 1 月初旬頃より左側腹部の膨隆、圧迫感に気付くもそのまま放置。その後感冒のために近医受診した際に、腹部腫瘍の精査を勧められ、2 月 13 日当院外科を受診、腹部 US および CT にて左水腎症、左腎嚢胞および左腎囊腫に接して左下腹部に嚢胞性病変を認めたため、精査目的にて 2 月 22 日入院となった。

入院時現症: 左側腹部に波動性を伴う腹部膨隆を認めた。下腹部正中に約 10 cm の手術痕を認めるも、その他身体、外陰部に異常を認めなかった。

入院時検査成績: 末梢血、検尿に異常なく、血液生化学検査で、LDH がやや高値を示す以外に異常所見を認めなかった。血中腫瘍マーカーは CA125, CA19-9, CEA, AFP すべて正常範囲内であった。

画像所見: DIP では左腎は高度の水腎症を認め、左尿管はまったく造影されなかった (Fig. 1)。超音波検査では拡張した腎盂尿管と、左腎下極に径 6 cm の嚢胞を認め、さらにその前下方に径 20 cm の巨大な嚢胞性病変を認めた。それぞれの嚢胞の位置関係を明確にするために腹部 CT, MR を施行した (Fig. 2, 3)。2 つの嚢胞は薄い被膜で接し、各嚢胞内容液を検索すると、腎嚢胞に異常なく、後腹膜嚢胞穿刺液は色調淡黄色清澄・細胞診陰性。生化学的には細胞外液に近似し、後腹膜漿液性嚢胞と診断した。しかし CA125 および CA19-9 が高値を呈しており、悪性の可能性も否定できず経腹的に腫瘍摘除術を行った。

手術所見: 腹部正中切開で開腹すると、腹腔内容を右前方に圧排するように後腹膜腔の隆起病変が確認できた。嚢胞周囲を剝離すると、壁は薄い被膜に被われ、周囲組織との癒着を認めず、また他臓器との交通もなく剝離は容易であったが、左尿管が圧迫され、水

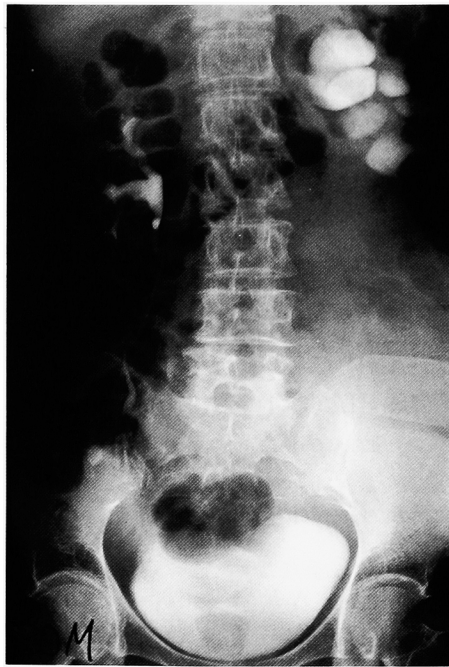


Fig. 1. IVP revealed left hydronephrosis.



Fig. 2. Computed Tomography shows a large mass with watery density, situated under the left renal cyst.

腎・尿管症の原因になっていることが確認できた。

摘出標本：嚢胞は卵円形で薄い平滑な被膜に包まれていた。大きさ $20 \times 15 \times 12$ cm, 内容液は淡黄色透明で 2,000 ml を越え、壁内腔に不整なく肉眼的に腫瘍などは認めなかった。

病理組織学的所見：嚢胞壁は線維性結合組織より成り、内腔は線毛上皮を混じた立方上皮 (Fig. 4A), ならびに粘液産生性の円柱上皮 (Fig. 4B) で被われ、核の異型性はなかった。立方上皮は、ABC 法による免疫染色で CA125 陽性 (Fig. 4C), 粘液細胞は PAS 染色に染まり、免疫染色では CA19-9 陽性 (Fig. 4D) であった。

以上の組織学的所見は卵巣嚢胞にしばしば認める所見と同様で、後腹膜の mixed mucinous and serous



Fig. 3. Sagittal T2-weighted MR image shows two high signal intensity cystic masses.

cystadenoma という診断であった。

術後経過：軽度の尿路感染が遷延したが、経過は良好で術後16日目に退院した。術後2カ月目の DIP では、軽度の拡張は認めるものの水腎症は著明に改善していた。

考 察

後腹膜腫瘍の多くは充実性で、嚢胞の報告は稀である。後腹膜嚢胞のもっとも古い分類は1924年 Handfield-Jones¹⁾ が行った分類法があるが、これは嚢胞性病変の発生源をもとにした分類法であり、成因に一定の見解がなされていない本症では、1979年に大井ら²⁾ によって提唱された内容液の性状による分類法が一般的である (Table 1)。

これによると自験例は漿液性嚢胞に分類されるが、本邦では1911年副島ら³⁾ の報告に始まり、最近では中山ら⁴⁾ が45例について集計を行っている。今回その集計に検討を加え、さらにその後の症例について追加集計を行った⁵⁻¹³⁾ その結果自験例は本邦で55例目に相当したが、最近10年間の後腹膜漿液性嚢胞18症例について性別・年齢・大きさ 初発症状・内容液の性状などについて検討した (Table 2)。

年齢は18歳から83歳まで (平均51.4歳)、女性が15例と圧倒的に多かった。大きさについては記載のあった12例中8例で腫瘍径が10 cm を越えており、中には内容液が6,000 ml にもおよぶ症例もあり巨大化する傾向を示唆しており、腹部腫瘍や膨満感などの初発症状を引き起こす原因となっていた。内容液の性状についてはほとんどが黄色透明で、生化学的組成も細胞外液に類似の組成であった。

自験例を含めて、腫瘍マーカー上昇例9症例につい

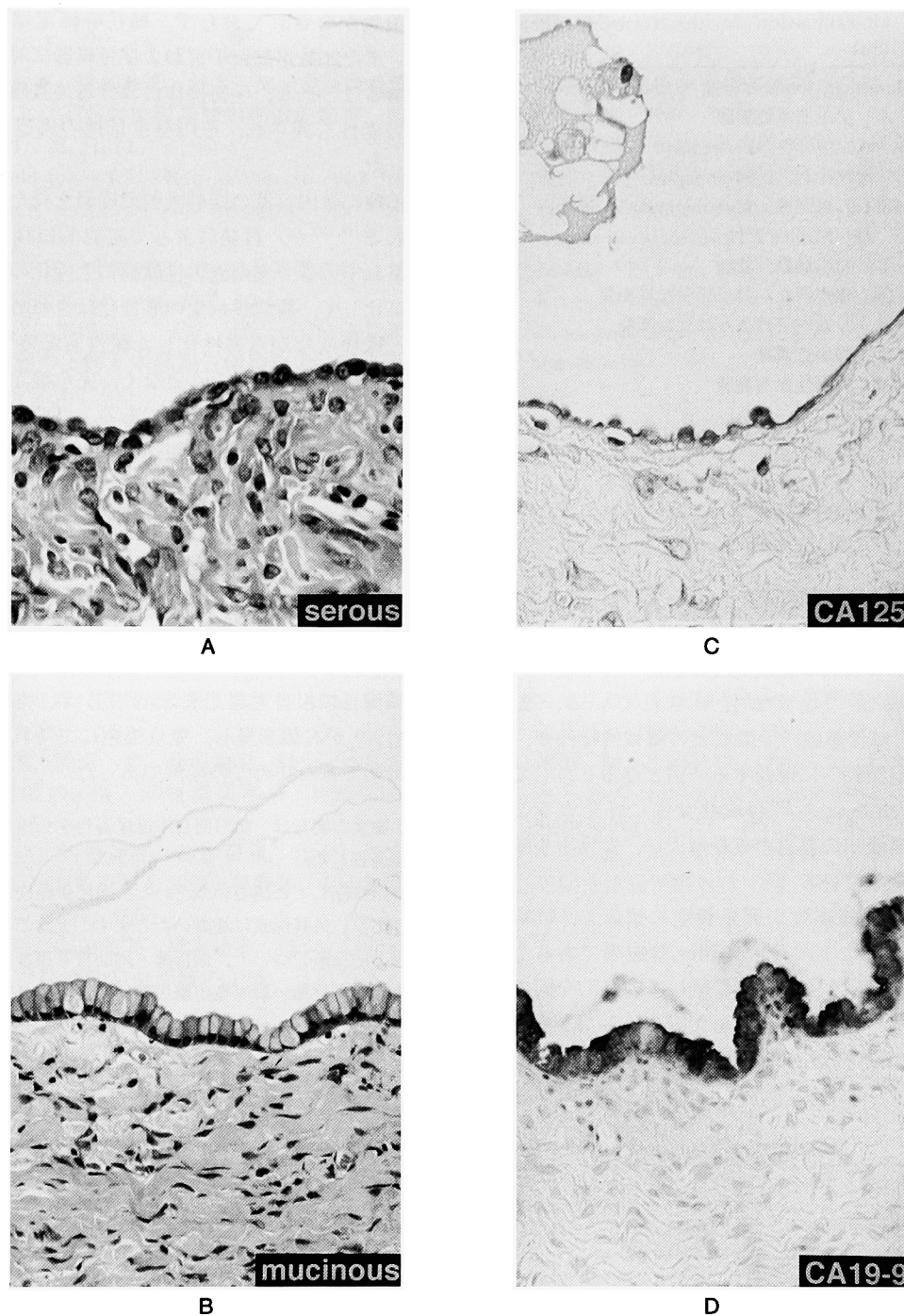


Fig. 4. Histopathological features of the cyst wall: The cyst was lined with a mixture of ciliated cuboidal cells (A) and mucin secreting columnar cells (B). Immunohistochemical staining by ABC method: The cyst wall proved positive for CA125 on cuboidal cells (C), and for CA19-9 on columnar cells (D).

での検討では, CA19-9, CEA が各 4 例, CA125 が 3 例, および TAP が 1 例と一定の傾向は認められなかった. またこのうち, 免疫染色にて組織内での局在が証明できたのは, 大橋ら⁶⁾, 大山ら¹¹⁾の報告例について自験例は 3 例目であった.

その発生起源には様々な説があり, 不明なところも多い. 一般には, 自験例の如く組織学的に卵巣腫瘍や組織と類似の像を呈すること, また頸管上皮, 子宮内

膜, 卵管上皮などに存在する CA-125 が高値を呈する症例もあることなどから, Muller 管を起源とする説が有力である. この際なぜ Muller 管が嚢胞性病変を形成するのかははっきりとは解明されていないが, Lauchlan¹⁴⁾ は上皮や中皮の変性, 化性により乳頭状, 嚢胞状変化をきたすと推定している.

さらに中皮の迷入説や副卵巣説, Wolff 管がガートナー管, 卵巣傍体, 卵巣上体として遺残した場合, そ

Table 1. Classification of the retroperitoneal cyst

Handfield-Jones の分類 (1924)	
I	泌尿器原性嚢腫
A)	前腎性 Pronephric
B)	中腎性 Mesonephric
C)	後腎性 Metanephric
D)	Muller 管性
II	結腸間膜性嚢腫
III	奇形腫ならびに類皮腫性嚢腫
IV	リンパ管性または乳び嚢腫
V	腸原性嚢腫
VI	外傷性血液嚢腫
大井らの分類 (1974)	
I	皮様嚢腫
II	リンパ嚢腫
III	漿液性嚢腫
IV	血液性嚢腫
V	その他

れらに発生する嚢胞が組織学的に類似することによる Wolff 管起源説¹⁵⁾などが提唱されている。また Mariza ら¹⁵⁾は骨盤腔内手術などの機械的操作が、中皮細胞を後腹膜腔内に播種する一因となると言っている。また Steinberg ら¹⁶⁾は成熟女性に好発することに注目し、無症状の嚢胞の成長増大に、女性ホルモンの関与を想定している。

自験例では、組織像が卵巣嚢胞に類似し、CA125 が高値であったことから、Muller 管由来であると考えられるが、CA19-9 も高値を呈していた。今回の過去10年間の集計で、CA19-9 が高値を呈した3症例中2症例^{17,18)}で、嚢胞内腔は円柱上皮であったが、免

疫染色がなされておらず、局在の確定は不明であった。また20数年前に子宮および付属器に対する手術歴があることより、手術操作における後腹膜腔への播種の可能性も残され、その発生母地の確定には至らなかった。

治療には内容液の穿刺吸引で経過を見た症例も散見される^{10,19)}が、再発によって最終的には摘除術が施行されている。また充実性腫瘍に悪性化の頻度が高いのに比して、嚢胞性病変の悪性化はきわめて稀であるが、低頻度ながら悪性化した報告もある^{20,21)}したがって被膜を損傷することなく、完全摘除術および注意深い病理学的検索が必要である。この際嚢胞液の腫瘍マーカーと、血液中の腫瘍マーカーは必ずしも平行して高値を呈することがないために、嚢胞液中マーカーの測定は、欠かすことのできない検査法といえる。

結 語

後腹膜漿液性嚢胞の1例を経験した。自験例は本邦第55例目に相当すると思われたが、嚢胞液中 CA125, CA19-9 が高値を呈し、免疫染色にてそれぞれの局在が証明できた初めての症例であった。

本論文の要旨は、第51回日本泌尿器科学会西日本総会において発表した。

手術に際してご協力いただいた、当院伊藤俊哉名誉院長および山家仁外科医長に深謝いたします。またこの症例の病理組織学的診断について、御指導・御助言を頂きました大分医科大学病理学第一講座横山繁生教授に、心より感謝申し上げます。

Table 2. Summary of retroperitoneal serous cyst during recent 10 years in the Japanese literature

報告年	報告者名	性別	年齢	大きさ	初発症状	内容液	その他
1990	国崎 ¹⁸⁾	女	32	60 ml	左側腹部腫瘍	黄色透明	CA19-9, CEA, TPA 高値
	山本	男	47	10×10×6 cm	左季肋部痛	透明	
	青柳	女	18	28×18×16 cm (3,450 gr)	下腹部膨隆	無色透明	
	若松 ⁵⁾	女	52	8.5×7.5×7.5 cm (250 gr)	左上腹部違和感	漿液	石灰化
1991	宮田	女	49	340 ml	腹部腫瘍	漿液	
	大橋 ⁶⁾	女	72	6,000 ml	腹部膨満感	淡褐色	CA125 陽性
	高島 ⁷⁾	女	60	3 cm	下腹部腫瘍		
1992	大堂	女	31	490 gr	右下腹部違和感	黄色透明	
	竹内 ⁸⁾	女	83	20×18×4 cm (980 gr)	腹部膨満感	淡黄色透明	多発性大腸癌, CEA 高値
1993	中村 ¹⁹⁾	女	70	最大径 11 cm (170 gr)	右側腹部腫瘍	黄色透明	CA 19-9 高値, 石灰化
1994	鈴木 ⁹⁾	女	55	32×18×17 cm (2,654 gr)	上腹部痛	黄褐色透明	CA125 高値
1995	中山 ⁴⁾	女	56	4.0×2.5 cm (15 ml)	左上腹部痛	淡黄色漿液	CEA 高値
	小川 ¹⁰⁾	男	52	15×14×9 cm (410 gr)	左腰部痛	黄褐色膿汁様	CA19-9 高値
1996	大山 ¹¹⁾	女	20	6×3×3 cm	右腰部痛	黄褐色粘調性	CEA 陽性像 (+)
1997	島本 ¹²⁾	男	75	7.8×6.7×5.9 cm (240 ml)	左下腹部腫瘍	淡黄色漿液性	
1999	出口 ¹³⁾	女	26		右背部痛		
		女	77		下腹部痛		
	自験例	女	67	20×15×12 cm (2,000 ml)	左側腹部膨隆	淡黄色透明	CA-125, CA19-9 陽性像 (+)

文 献

- 1) 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
- 2) Handfield-Jones RM: Retroperitoneal cysts: their pathology, diagnosis, and treatment. Br J Surg **12**: 119-134, 1924
- 3) 副島豫四郎, 岩崎徳松: 腹部後部漿液性に就きて. 福岡医誌 **10**: 460-470, 1917
- 4) 中山壽之, 富田涼一, 三宅 洋, ほか: 後腹膜漿液性嚢腫の1例と本邦報告例の検討. 日大医誌 **54**: 218-222, 1995
- 5) 若松慶太, 露木 建, 納賀克彦, ほか: 石灰化を伴った後腹膜嚢腫の1例. 川崎医師会医会誌 **7**: 28-32, 1990
- 6) 大橋正和, 二木昇平, 織田孝英, ほか: 内容液CA125 が高値を呈した巨大後腹膜嚢胞. 臨泌 **45/9**: 684-686, 1991
- 7) 高島一郎, 中泉治雄, 村上真也, ほか: 後腹膜原発粘液嚢腫の1例. 臨外 **46**: 1541-1544, 1991
- 8) 竹内謙二, 福浦竜樹, 西脇 寛, ほか: 大腸多発癌に合併した後腹膜漿液性嚢腫の1例. 三重医 **36**: 227-231, 1992
- 9) 鈴木 薫, 黒沢 尚, 藤岡知昭, ほか: 後腹膜漿液性嚢腫の1例. 泌尿器外科 **7**: 1275-1278, 1994
- 10) 小川正至, 古堅進亮, 鈴木博雄, ほか: 内容液CA19-9 が高値を呈した後腹膜嚢腫. 日泌尿会誌 **86**: 1591-1594, 1995
- 11) 大山 司, 宗田滋夫, 橋本純平, ほか: 後腹膜に発生した粘液性嚢胞腺腫の1例. 日臨外医会誌 **57**: 2283-2287, 1996
- 12) 島本 強, 片桐義文, 山内 一, ほか: 高齢者に発症した後腹膜漿液性嚢腫の1例. 岐阜大医紀 **45**: 352, 1997
- 13) 出口智宙, 末永裕之, 鈴木祐一, ほか: 後腹膜嚢腫の2例. 日臨外医会誌 **8**: 1949, 1997
- 14) Lauchlan S: The secondary mullerian system. Obstet Gynecol Surv **27**: 133-146, 1972
- 15) Mariza NP, Peggy MD, Carmen ST, et al.: Benign Retroperitoneal Cysts of Mullerian Type: a clinicopathologic study of three cases and review of the literature. Int J Gynecol Pathol **13**: 273-278, 1994
- 16) Steinberg L, Rothman D, Drey NW, et al.: Mullerian cyst of retroperitoneum. Am J Obstet Gynecol **107**: 963-964, 1970
- 17) 森山信男, 伊藤一元, 額賀 優, ほか: 巨大な後腹膜漿液性嚢腫の1例. 臨泌 **32**: 1159-1163, 1987
- 18) 国崎主税, 杉山 貢, 土屋周二: 後腹膜漿液性嚢胞の1例. 日臨外医会誌 **51**: 759-762, 1990
- 19) 中村 啓, 岡崎俊也, 南塚俊雄, ほか: 腹部腫瘤で発見された後腹膜漿液性嚢腫の1例. 日臨外医会誌 **54**: 1063-1067, 1993
- 20) 永田二郎, 山内晶司, 寺部啓介, ほか: 後腹膜にみられた mucinous cystadenoma of borderline malignancy の1例. 日外会誌 **88**: 489-492, 1987
- 21) 千田 匡, 渡辺英伸, 本山悌一, ほか: 後腹膜原発粘液性嚢胞腺癌の1例. 癌の臨 **36**: 205-210, 1990

(Received on October 15, 1999)

(Accepted on April 15, 2000)