

## 後腹膜原発の Mucinous cystadenocarcinoma の 1 例

堀江 憲吾<sup>1</sup>, 菊地 美奈<sup>1</sup>, 土屋 朋大<sup>1</sup>, 三輪 好生<sup>1</sup>  
 南館 謙<sup>1</sup>, 横井 繁明<sup>1</sup>, 仲野 正博<sup>1</sup>, 江原 英俊<sup>1</sup>  
 出口 隆<sup>1</sup>, 広瀬 善信<sup>2</sup>

<sup>1</sup>岐阜大学大学院医学系研究科病態制御学講座泌尿器科学

<sup>2</sup>岐阜大学医学部附属病院病理部

A CASE OF PRIMARY RETROPERITONEAL  
MUCINOUS CYSTADENOCARCINOMA

Kengo HORIE<sup>1</sup>, Mina KIKUCHI<sup>1</sup>, Tomohiro TUCHIYA<sup>1</sup>, Kosei MIWA<sup>1</sup>,  
 Yuzuru MINAMIDATE<sup>1</sup>, Shigeaki YOKOI<sup>1</sup>, Masahiro NAKANO<sup>1</sup>, Hidetoshi EHARA<sup>1</sup>,  
 Takashi DEGUCHI<sup>1</sup> and Yoshinobu HIROSE<sup>2</sup>

<sup>1</sup>The Department of Urology, Graduate School of Medicine, Gifu University

<sup>2</sup>The department of Surgical pathology, Gifu University Hospital

The present report describes a 31-year-old Japanese woman with a retroperitoneal cystic mass adjoining below the left kidney. No disseminated tumors were observed, and resection of the tumor only was performed laparoscopically. The surgical specimen showed a well-differentiated papillary mucinous cystadenocarcinoma of the ovarian type. Additional gynecological examination, including positron emission tomography-computed tomography, showed no malignancy at other sites. Recurrence or metastasis has not been observed after more than 1 year of follow-up. Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma is a very rare tumor. Thirty-six and 55 cases have been reported previously in the English and Japanese literature, respectively. The pathogenesis of the disease remains unclear and controversial. A standard treatment has not been established in the literature, and a consistent prognosis has not been reported. Therefore, close post-operative follow-up is strongly recommended.

(Hinyokika Kyo 55 : 405-408, 2009)

**Key words :** Retroperitoneal, Mucinous cystadenocarcinoma, Ovarian type, Laparoscopically

## 緒 言

後腹膜原発粘液性嚢胞腺癌は稀な疾患で、卵巣腫瘍との類似性が指摘されているが、その起源ははっきりしていない。診断基準、治療法も確立しておらず長期予後も不明である。今回、われわれは左後腹膜腔に発生した粘液性嚢胞腺癌を経験したので報告する。

## 症 例

患者：31歳，女性  
 主訴：背部痛  
 既往歴：特記すべきことなし。経産分娩2回  
 家族歴：胃癌（叔父） 口唇良性腫瘍（母） リウマチ（祖母）  
 現病歴：2008年1月突然の背部痛のために近医受診し、尿路結石症を疑われた。その後のCT，MRI検査にて左腎に接する腫瘍を指摘され、当科紹介受診となった。  
 入院時現症：身長170 cm，体重56.3 kg，血圧97/67 mmHg。結膜に貧血，黄疸を認めず。胸部に異常

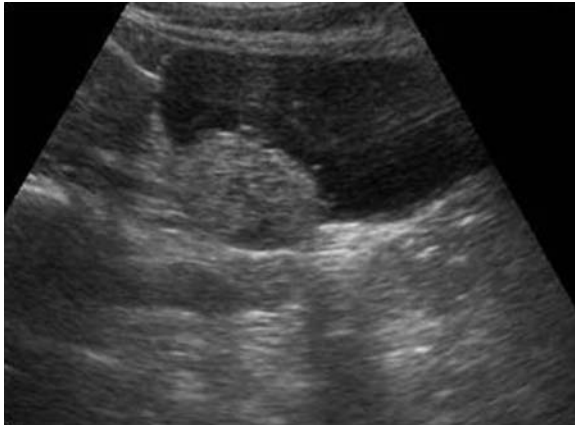
所見なし。左腰背部に叩打痛を認め、臍左に弾性のある腫瘍を触れた。

入院時検査所見：CEA 0.6 ng/ml，CA19-9 6.3 U/ml，CA125 14.9 U/ml，SCC 1.2 ng/ml と各腫瘍マーカーは基準値内であった。その他、血液検査および尿検査ともに特記すべきことはなかった。

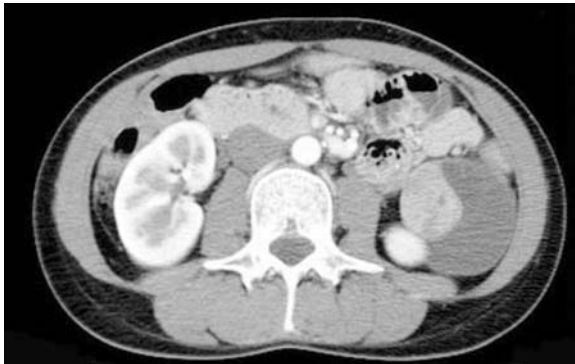
腹部超音波検査：左腎下極に約8 cm大の嚢胞性腫瘍を認めた。側臥位，腹臥位では呼吸性の移動が腎と異なり，後腹膜腫瘍を疑うものであった。嚢胞内は，液体を推測させる低エコーで均一な部分と，一部不均一な高エコーな部分が混在していた（Fig. 1）。

腹部CT検査：左後腹膜腔に115 mm大の一部充実性の嚢胞性腫瘍を認めた。内部に隔壁様構造を有し，辺縁石灰化を認めた。腫瘍の充実成分は造影効果を認めた。腫瘍は腎に接するが，明らかなbeak signはなかった。造影効果は比較的緩徐であり，悪性病変よりは間葉系腫瘍や血腫が疑われたが，完全には否定できなかった（Fig. 2）。

腹部MRI検査：左腎下極に接して尾側方向に11 cm大の嚢胞性腫瘍を認めた。嚢胞は頭側と尾側の2



**Fig. 1.** Ultrasound. Ultrasound revealed a 4 cm cystic mass with solid area.



**Fig. 2.** CT. Computed tomography revealed a 15 × 9 cm cystic mass with solid area adjacent below the lower pole of the left kidney.

房に別れ、頭側部には充実成分を認めた。同部の造影MRIでは比較的均一に濃染し明らかな wash out はなかった。MRI 所見からは神経鞘腫やその他の間葉系腫瘍の可能性が示唆され、また嚢胞を形成した嫌色素細胞性または乳頭状腎癌が疑われた。

MIBG 副腎シンチ：明らかな高集積は認めず、傍神経節由来や交感神経由来の腫瘍は否定的であった。

酸性蓄尿：測定項目（アドレナリン、ドーパミン、ノルアドレナリン、VMA、5-HIAA）はすべて基準値内にて、ホルモン活性は有さないと判断した。

画像診断上、腎との境界は明瞭であり腎癌は否定的であった。しかし、嚢胞内に充実成分を認めたので、悪性の後腹膜腫瘍を否定できず、摘除の適応と考えた。また、腫瘍の境界は明瞭で周囲への浸潤所見も認められないために悪性度は低いと考え、患者家族に説明の上、腹腔鏡下摘除術を行うこととした。

手術所見：2008年4月全身麻酔下にて右半側臥位にて腹腔鏡手術を施行した。腫瘍は類円形で周囲との境界も明らかで、腎臓および周囲臓器との癒着はまったくなく、剥離は容易であった。腫瘍被膜を損傷することなく、回収袋に腫瘍を入れてから嚢胞内容液を穿刺後に恥骨上横切開から体外に摘出した (Fig. 3)。

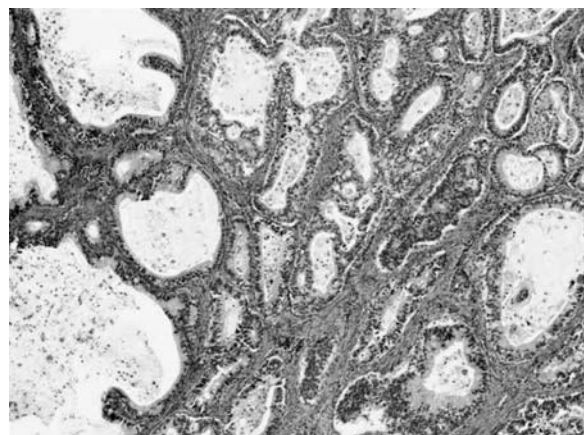


**Fig. 3.** Operation. The intraoperative laparoscopy showed the cystic tumor with smooth surface.

摘出標本の肉眼所見：腫瘍径は 15 × 5 × 3 cm で、術前画像検査の通り嚢胞性部分と一部充実成分から形



(a)



(b)

**Fig. 4.** Surgical specimen. (a) Macroscopically the tumor consisted of a solid lesion and cystic lesions including a blown fluid and a clear fluid. (b) Areas ranging from a benign mucinous cyst to borderline mucinous tumour to mucinous cystadenocarcinoma were observed on microscopically.

成されていた。嚢胞内容液は黒褐色の部分と白色透明の部分があった (Fig. 4 (a))。

病理組織所見: 嚢胞壁は単層上皮に内張りされた線維性結合組織からなる。上皮の大部分は扁平化していたが、一部で高円柱上皮認めた。充実成分は高円柱上皮からなる大小の腺管からなり、異型に乏しい上皮と低乳頭状に増殖する異型の目立つ上皮が混在しており、一部は腺管が癒合し合う様な像もみられた。腫瘍成分が線維性被膜を明らかに超える像や脈管侵襲は認められなかった。以上から粘液性嚢胞腺癌と診断した。組織型からは卵巣、臍臓由来が考えられた (Fig. 4 (b))。

嚢胞内溶液: 白色透明な部分、黒褐色の部分ともに壊死性変化を認め、N/C 比大、核小体腫大を認め、核のクロマチンの増量を示す異型細胞を認めた。病理診断上は adenocarcinoma を疑う所見であった。白色透明な部分は生化学検査上、TP/ALB: 1.0/0.5 g/dl, Cr: 0.66 mg/dl, BUN: 44.2 mg/dl, Na/K/Cl: 138 mEq/5.9 mEq/140 mEq であった。黒褐色の部分は生化学検査上、TP/ALB: 3.5/2.3 g/dl, Cr: 0.56 mg/dl, BUN: 12.2 mg/dl, Na/K/Cl: 142 mEq/4.2 mEq/112 mEq と血性成分を示した。

免疫染色: 腺上皮細胞は cytokeratin 7, 上皮膜抗原 (EMA), CEA が陽性, cytokeratin 20, CA125, CD10 が陰性であった。間質成分は desmin と平滑筋アクチンが陽性, inhibin はごくわずかに陽性であった。これらは女性器由来の腫瘍として大きく矛盾しない所見であったが、原発巣の特定は困難であった。

術後経過: 術後経過良好で第6病日で退院となった。退院後、婦人科において経膈超音波検査、双合診を施行されたが、卵巣および子宮の異常は認めなかった。PET-CT も施行したが、他の原発巣を示す所見、局所再発、遠隔転移は認められなかった。そのため後腹膜原発の粘液性嚢胞腺癌と診断した。画像診断から周囲への浸潤を認めず、また病理結果から壁への浸潤傾向を認めなかったため、追加治療を行わず経過観察とした。術後12カ月現在、再発を認めていない。

## 考 察

後腹膜原発粘液性嚢胞腺癌は、現在までにわれわれが調べた限り本邦55例、海外36例が報告されている。年齢は17~83歳の平均48.4歳で、男性例は3例のみで他はすべて女性例であった<sup>1,2)</sup>。組織学的には卵巣の粘液嚢胞腺癌に類似しているという報告が多く<sup>3)</sup>、その発生は、①奇形腫からの発生<sup>4)</sup>、②異所性卵巣由来<sup>5)</sup>、③後腹膜へ陥入した体腔上皮由来などの説がある<sup>6)</sup>。この中で現在最も有力とされているのは、③後腹膜へ陥入した体腔上皮由来という説である。胎生期に体腔上皮細胞の集塊が卵巣原基さらには腹膜を形成する過程で封入嚢胞を腹腔内に形成し、化生を経て後

腹膜腫瘍を形成する、と考えられている<sup>1)</sup>。文献的には粘液産生腫瘍の発生母地として卵巣が最多で、ついで臍、虫垂と報告されている。後腹膜発生は1.8%と非常に稀なために診断には多臓器からの転移性腫瘍を否定する必要がある。卵巣、虫垂、臍の他にも子宮、肺、尿管、胆嚢、卵管、結腸に異常を認めないことの確認が必要である。自験例ではCT, MRI, PET, 手術所見にて後腹膜腔以外に異常を認めなかったために後腹膜原発と診断した。

術前の画像診断により後腹膜嚢腫の診断は容易であるが、良悪性の鑑別は困難である。悪性を疑わせる所見としては嚢胞壁の不整と石灰化、内腔への突出が特徴とされている<sup>7,8)</sup>が、自験例のように術前診断が困難で摘除術が診断的治療となる報告例がほとんどである。

後腹膜粘液性嚢胞腺癌の腫瘍マーカーは卵巣粘液産生癌と同様にCA19-9, CEA, CA125が報告されており、補助的診断法として使用できる<sup>9)</sup>。しかし、卵巣腫瘍、腸粘膜腫瘍でも同様なマーカーの上昇を認めるために、原発巣や転移の診断には有用でない<sup>8)</sup>。

報告例ではほぼ全例に手術が施行されている。また、根治には完全切除が必須である<sup>1)</sup>。報告例では腫瘍摘出術のみが50例、子宮付属器合併切除が12例、虫垂合併切除が6例であり、術中に浸潤が確認された臓器(腎臓、結腸、脾臓、副腎、腸腰筋、横隔膜、結腸間膜、胆嚢)の合併切除が13例であった。子宮付属器合併切除は海外例を中心に行われている。腹腔鏡による摘出術の報告は海外4例、本邦3例で自験例が8例目となる。自験例では腫瘍が境界明瞭で周囲への浸潤所見も認められないために悪性度は低いと考え、腹腔鏡手術を選択した。しかし、術中被膜損傷をきたした死亡例の報告<sup>10)</sup>もあるため、慎重な手術操作が必要である。

本疾患での術後補助化学療法の適応であるが、卵巣粘液腺癌に従って、CAP (シスプラチン アドリアマイシン シクロフォスファミド) 療法が実施された例が多いが、確立した化学療法は存在せず、有効であるという報告もない<sup>1,10)</sup>。自験例では術中被膜損傷がなく、浸潤もなかったために術後補助化学療法は行わなかった。

予後は比較的良いとの報告が多いが、術後の再発例や術前にリンパ節転移をきたした例も存在する。また、報告例は術後の経過観察期間が短いものが多い<sup>11)</sup>。そのため慎重な経過観察が必要であると考えられる。

## 結 語

今回、稀な後腹膜原発粘液性嚢胞腺癌の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

## 文 献

- 1) Tjalma WA and Vaneerdeweg W: Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma are a distinct entity. *Int J Gynecol Cancer* **18**: 184-188, 2008
- 2) 豊田康義, 森嶋友一, 鈴木一郎, ほか: 後腹膜粘液性嚢胞腺癌の1例. *日臨外会誌* **68**: 2372-2377, 2007
- 3) Kessler TM, Kessler W, Neuweiler J, et al.: Treatment of a case of primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma: is adjuvant hysterectomy and bilateral salpingo-oophorectomy justified? *Am J Obstet Gynecol* **187**: 227-232, 2002
- 4) Peterson WF: Malignant degeneration of benign cystic teratomas of the ovary; a collective review of the literature. *Obstet Gynecol Surv* **12**: 793-830, 1957
- 5) Burnett JE Jr: Supernumerary ovary. a case report. *Am J Obstet Gynecol* **82**: 929-930, 1961
- 6) Tenti P, Carnevali L, Tateo S, et al.: Primary mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum two cases. *Gynecol Oncol* **55**: 308-312, 1994
- 7) 才川義明, 片井 均, 丸尾啓敏, ほか: 後腹膜原発粘液性嚢胞腺癌の1例. *日消外会誌* **25**: 916-920, 1990
- 8) De Leon DC, Perez-Montiel D, Chanona-Vilchis J, et al.: Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma: report of two cases. *World J Surg Oncol* **5**: 5, 2007
- 9) 刀山五郎, 森 啄児, 大橋一朗, ほか: 血清 19-9 高値を示した後腹膜高分化型嚢胞腺癌の1例. *日臨外会誌* **60**: 1938-1941, 1999
- 10) 森 直樹, 蔦原宏一, 福原慎一郎, ほか: 後腹膜原発粘液嚢胞腺癌の1例. *泌尿紀要* **49**: 559-561, 2003
- 11) 久保陽司, 二宮基樹, 佐々木寛, ほか: 後腹膜原発粘液嚢胞腺癌の1例. *日臨外会誌* **66**: 2851-2856, 2005

(Received on December 25, 2008)

(Accepted on March 8, 2009)