

腹腔鏡下に切除した後腹膜 Muller 管嚢胞の 1 例

金子 剛^{1*}, 西本紘嗣郎¹, 矢内原 仁², 内田 厚¹¹国家公務員共済組合連合会立川病院, ²埼玉医科大学病院泌尿器科A CASE OF RETROPERITONEAL MULLERIAN CYST
RESECTED LAPAROSCOPICALLYGou KANEKO¹, Koshiro NISHIMOTO¹, Hitoshi YANAIHARA² and Atushi UCHIDA¹¹The Department of Urology, Kyosai Tachikawa Hospital²The Department of Urology, Saitama Medical University Hospital

A 67-year-old female patient had a cystic mass, 6 cm in diameter, which was incidentally detected on the dorsal side of the cecum in the retroperitoneum. A laparoscopic tumor excision was performed. Microscopically, the majority of the cystic wall consisted of Mullerian type serous epithelium, partially including the columnar epithelium containing round nuclei and mucin production. The columnar epithelium was similar to the uterocervical epithelium, and there was proliferation of dense collagen fibers resembling ovarian stroma under the epithelium. These microscopic findings were consistent with ovarian seromucinous cystadenoma. Therefore, the cyst was diagnosed to be a retroperitoneal Mullerian cyst. This is the 15th case of a cyst of this type reported and is the first case in which a laparoscopic excision was performed.

(Hinyokika Kiyo 55 : 753-756, 2009)

Key words : Retroperitoneal cyst, Mullerian cyst, Laparoscopic surgery

緒 言

後腹膜嚢胞は非常に稀であり, 10万人に1人の発生率である¹⁾. 発生機序や形態的に多種に分類される. その中でも Muller 管嚢胞はきわめて稀であり²⁾, われわれが調べた限りでは過去に14例が報告されているのみである. 今回われわれは腹腔鏡下に切除した後腹膜 Muller 管嚢胞の1例を経験したので文献的考察を加え報告する.

症 例

患者: 67歳, 女性

主訴: なし

既往歴: 胆石 (56歳, 腹腔鏡下胆嚢摘出術), 痔核 (56歳, 痔核根治術), 特発性血小板減少性紫斑病

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2005年10月下旬, 肉眼的血尿を主訴に近医を受診した. 尿細胞診で class IV を指摘され, 11月9日に精査目的にて当院を受診した. 12月16日, 逆行性腎盂造影, 経尿道的膀胱粘膜生検などを行ったが尿路上皮腫瘍は認められなかった. 以降, 外来にて尿細胞診, 膀胱鏡, IVP (~2007年), CT (2008年~) で経過観察することとした. 2008年5月15日のCTにて, 右後腹膜腔内, 回盲部背側に嚢胞性病変を認めた. 注

腸造影では消化管との連続性は認めなかった. MRI を施行したが診断には至らず, 摘除術を勧めたが, 希望により経過観察した. 同年11月20日に行ったCTでも同様の所見であったが, 患者の希望により組織学的検索および治療のため腫瘍摘除術を行うこととした.

現症: 身長 158 cm, 体重 57 kg, 血圧 151/70 mmHg, 脈拍 55/min, 体温 36.1°C

血液生化学検査: WBC 4,100/ml, Hb 13.3 g/dl, Plt 16.0万/ml, TP 7.1 g/dl, TB 1.5 mg/dl, BUN 15.3 mg/dl, Cr 0.6 mg/dl, Na 144 mEq/l, K 4.4 mEq/l, Cl 109 mEq/l, Ca 9.3 mg/dl, IP 4.3 mg/dl, LDH 188 IU/l, ALP 290 IU/l, AST 14 IU/l, ALT 12 IU/l, Glu



Fig. 1. Computed tomography showed a unilocular cystic mass, 6 cm in diameter, behind the cecum in the retroperitoneum.

* 現: 慶應義塾大学病院泌尿器科

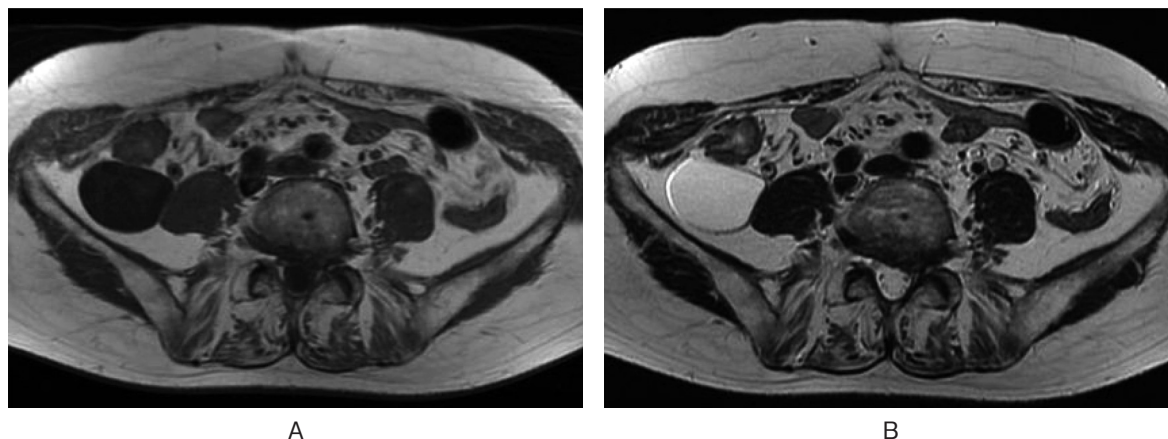


Fig. 2. Magnetic resonance imaging revealed that the cystic mass consisted of the thin wall and homogeneous content with low signal intensity in a T1-weighted image (A) and high signal intensity in a T2-weighted image (B).

101 mg/dl, CRP <0.25 mg/dl

尿検査：pH 6.0, RBC 1~4/HPF, WBC 5~9/HPF

画像所見：CT；上行結腸から盲腸背側の右後腹膜腔に $6 \times 3 \times 4.3$ cm の壁の薄い単房性嚢胞性腫瘤を認めた (Fig. 1)。MRI；単房性嚢胞性腫瘤の壁は薄く、内部は T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号を呈し、内容液は漿液性と考えられた (Fig. 2A, 2B)。

入院後経過：上記画像診断より lymphangioma, cystic teratoma, mesothelial cyst などの良性の嚢胞性腫瘍が疑われた。2009年1月7日、腹腔鏡下後腹膜嚢胞摘除術を施行した。腹腔内よりアプローチし、傍結腸溝を切開剥離し、上行結腸を内側に授動すると、薄い壁に覆われた嚢胞を認めた。嚢胞の内側には結腸背側に位置する虫垂と、嚢胞との連続性はなかった。また卵巣との連続性も認めなかった。嚢胞を周囲より全周性に剥離し、摘出した。術後経過良好にて、術後第5病日に退院となった。

術後の尿細胞診で class V を認め、4月1日、経尿道的膀胱粘膜生検を施行した。膀胱後壁、右側壁に発赤した不整な粘膜を認め、同部を生検した。病理組織診断は、膀胱癌 (Urothelial carcinoma > Adenocarcinoma, G3, pTis) であり、BCG の膀胱内注入療法を施行した。

摘出検体：薄い壁に覆われた単房性嚢胞で 4 cm 大であった。内部には無色透明の液体が貯留していた。

内容液には軽度腫大した立方、円柱上皮細胞を認めたが、細胞診上悪性所見はなかった。

病理組織学的所見：萎縮、平坦化をきたした Mullerian type の漿液性上皮が壁の大部分を構成する単房性嚢胞性病変で、上皮下には浮腫の強い線維性間質の壁を伴い、その外側には後腹膜由来と考えられる脂肪組織を認めた (Fig. 3)。また嚢胞壁の一部に円形核、胞体内粘液を含有する円柱上皮を認めた。この粘液性上皮は子宮内頸部腺の円柱上皮と類似し、上皮下

には卵巣間質と類似する緻密な膠原線維の増生を認めた (Fig. 4)。卵巣の粘漿混合性嚢胞腺腫と同様の所見

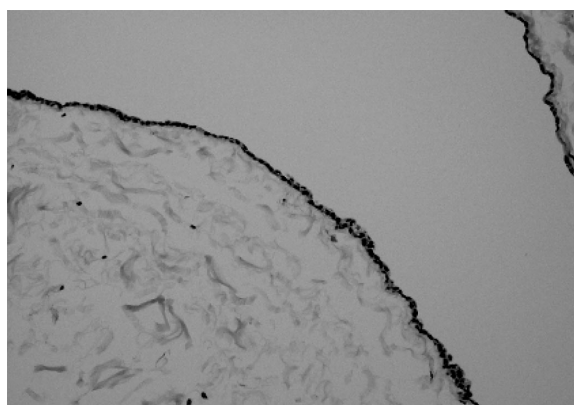


Fig. 3. Microscopic results of the cystic mass. The majority of the cystic wall consisted of Mullerian type serous epithelium, which was atrophic and flattening (H & E staining, original magnification: $\times 200$).

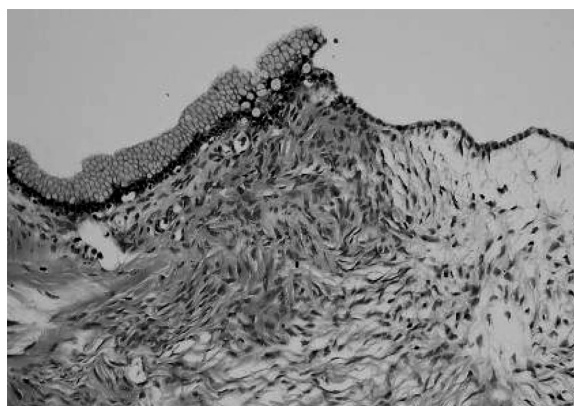


Fig. 4. Part of the cyst wall had underlying columnar epithelium with round nuclei and mucin production, as seen in the ureterocervical epithelium. There were also dense collagen fibers under the epithelium resembling ovarian stroma (H & E staining, original magnification: $\times 200$).

であり, 卵巣との連続性がないことより, 後腹膜に発生した Muller 管嚢胞と診断した.

考 察

後腹膜嚢胞は, 後腹膜脂肪組織内にあり, 脂肪組織以外明らかに周囲の臓器と交通のない嚢胞である. Handfield-Jones が, 発生起源により, ① cysts of urogenital origin, ② cysts of mesocolic origin, ③ teratomatous and dermoid cysts, ④ lymphatic or chylous cysts, ⑤ enterogenous cysts, ⑥ traumatic blood cysts に分類した³⁾. Cysts of urogenital origin は胎児期の尿生殖器官の痕跡から発生し, 起源によってさらに pronephric, mesonephric, metanephric, Mullerian type に分類される²⁾.

Muller 管嚢胞は, Muller 管由来の上皮に覆われた嚢胞である. 男性骨盤内に好発し, 剖検例では0.7~1%にみられると報告されている. Muller 管は胎生6週頃に中腎の外側に現れ, 女性では卵管, 子宮および膈上部に分化し, 男性では胎生精巣より分泌される Mullerian inhibiting factor にて退化し, 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のが Muller 管嚢胞と呼ばれ⁴⁾, 剖検例では男性骨盤内に0.7~1%の頻度でみられると報告されている⁵⁾. しかし後腹膜原発の Muller 管嚢胞はきわめて稀である. 1970年に Steinberg ら⁶⁾により報告されて以降, われわれが調べた限りでは14例が報告されており, 自験例が15例目にあたる (Table 1)^{2, 6-16)}. 15例すべてが女性である. 発生機序は明確ではないが, 3つの説が唱えられている. 1つは, 胎生期の Muller 管の痕跡が異常なホルモン刺激により腔を形成するという説である²⁾. 自験例は閉経後であり, ホルモン治療歴も有さず, この説によって嚢胞が

発生したとすると, 閉経前に形成されていた嚢胞が, 尿細胞診陽性の経過観察目的に2008年より CT を施行することとしたため偶発的に発見されたことになる. その他に体腔の上皮が漿液や円柱状の上皮に分化し, 周囲の組織内に陥入し, 嚢胞構造を形成するという説¹⁷⁾や, 逆行性月経や骨盤内手術により異所性の子宮内膜組織が形成され, 同部より嚢胞が生じるという説¹⁸⁾がある. 自験例では腹腔鏡下胆嚢摘出術, 痔核根治術, 経尿道的膀胱粘膜生検歴はあるが, 他に骨盤手術歴を有さなかった. 前述の発生機序により男性にも発生する可能性があると考えられるが, 現在まで報告されていない.

後腹膜嚢胞は特徴的な臨床所見, 検査所見を呈さず, 術前診断が難しい. 画像上も鑑別が難しく, Kurtz らは術前の正診率は25%と報告している¹⁹⁾. さらに3%以下と稀ではあるが悪性の症例が存在する¹⁹⁾. 自験例は画像上, 漿液性の内容液を含有する単房性嚢胞性腫瘍であり, 均一な薄い壁で覆われており良性と考えられた. さらに同腫瘍は無症候性であったが, 画像のみでは診断に至らず, 確定診断のためには摘除術を要することや稀に悪性の症例が存在することより摘除術を勧めた. 一度は経過観察を選択されたが, 半年後に摘除術を希望されたため, 摘除術を施行した. 特に後腹膜 Muller 管嚢胞は自験例を含め15例すべてで術前診断に至っておらず, 嚢胞摘出による病理診断にて確定している. また内容液の吸引や開窓術は再発率が高く, 施行すべきでない²⁰⁾と考えられており, 完全摘除が勧められる. 後腹膜嚢胞は壁が薄く, 周囲との癒着が粗であり剥離が容易な症例が多く腹腔鏡手術のよい適応であると考えられている²¹⁾. しかし, 過去の後腹膜 Muller 管嚢胞の報告例では, 14例中11例で径 10 cm 以上と大きいためか, 腹腔鏡

Table 1. Reported cases of retroperitoneal Mullerian cyst

報告者	発表年 (年)	年齢	性別	主訴	手術・ホルモン治療歴	嚢胞径 (cm)
原田	2007	30	女	腹部腫瘍	なし	17
Kassab A	2007	80	女	腹部不快感	なし	35
Park SC	2006	38	女	なし	腎移植	Fist
Ray M	2005	53	女	腹部膨満感	なし	16
唐崎	2005	83	女	左側腹部痛	子宮切除・帝王切開	7
Shayan H	2004	36	女	腹部不快感	なし	12
Yohendran J	2004	42	女	腹部腫瘍	なし	13
Konishi E	2003	35	女	腹部腫瘍	なし	20
Lee J	1998	47	女	腹部膨満感	ホルモン療法	25
Mariza N	1994	73	女	腹部膨満感	子宮附属器切除	17
Mariza N	1994	45	女	なし	附属器切除	15
Mariza N	1994	68	女	なし	子宮附属器切除	8
Harpas N	1987	48	女	なし	なし	23
Steinberg L	1970	19	女	腹部腫瘍	ホルモン療法	45
自験例	2009	67	女	なし	腹腔鏡下胆嚢摘出術	6

下摘除術は施行されていない。自験例でも画像検査により良性の嚢胞性腫瘍が示唆された。施行した腹腔鏡下嚢胞摘除術時所見では、腫瘍と周囲の癒着はなく、剥離は容易であった。嚢胞内容液の漏出なく、壁を含めた完全摘除を施行しえたため、再発の可能性は低いと考えられるが、今後、膀胱癌と併せて定期的経過観察の予定である。

結 語

今回われわれは、腹腔鏡下に切除しえた後腹膜Muller管嚢胞の1例を経験したので文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) de Perrot M, Brundler M, Totsch M, et al.: Mesenteric cysts. toward less confusion? *Digest Surg* **17**: 323-328, 2000
- 2) Lee J, Song SY, Park CS, et al.: Mullerian cysts of the mesentery and retroperitoneum: a case report and literature review. *Pathol Int* **48**: 902-906, 1998
- 3) RM H-J: Retroperitoneal cysts: Their pathology, diagnosis, and treatment. *Br J Surg* **12**: 119-134, 1924
- 4) 松井 隆, 大部 亨, 大岡均至, ほか: ミノサイクリン注入療法を行ったミューラー管嚢胞の1例. *泌尿紀要* **39**: 69-72, 1993
- 5) 狩野武洋, 伊野部拓治, 林 秀樹: ミューラー管嚢胞の1例. *泌尿器外科* **13**: 799-801, 2000
- 6) Steinberg L, Rothman D and Drey NW: Mullerian cyst of the retroperitoneum. *Am J Obstet Gynecol* **107**: 963-964, 1970
- 7) 原田勝久, 野口 剛, 菊池隆一, ほか: 後腹膜Muller管嚢胞の1例. *日臨外会誌* **68**: 1017-1021, 2007
- 8) Kassab A, El-Bialy G, Clark J, et al.: Unusual presentation of 22-kilogram retroperitoneal mullerian serous cystadenoma. *Gynecol Oncol* **104**: 257-259, 2007
- 9) Park SC, Kim TH, Moon IS, et al.: A case of benign retroperitoneal cyst of Mullerian type in kidney transplant patient. *Transplant Proc* **38**: 2086-2087, 2006
- 10) Ray M, Bose B and Honore L: A 53-year-old woman with abdominal pain and fullness. *CMAJ* **172**: 184, 2005
- 11) 唐崎秀則, 稲垣光裕, 石崎 彰, ほか: 後腹膜Muller管嚢胞の1例. *手術* **59**: 1757-1760, 2005
- 12) Shayan H, Owen D and Warnock G: Surgical images: soft tissue. Mullerian cyst of the upper abdomen: a lesion mimicking pancreatic cystadenoma. *Can J Surg* **47**: 369-371, 2004
- 13) Yohendran J, Dias MM, Eckstein R, et al.: Benign retroperitoneal cyst of Mullerian type. *Asian J Surg* **27**: 333-335, 2004
- 14) Konishi E, Nakashima Y and Iwasaki T: Immunohistochemical analysis of retroperitoneal Mullerian cyst. *Hum Pathol* **34**: 194-198, 2003
- 15) Mariza N, Peggy M, Carmen S, et al.: Benign retroperitoneal cyst of Mullerian type: a clinicopathologic study of three cases and review of the literature. *Int J Gynecol Pathol* **13**: 273-278, 1994
- 16) Harpaz N and Gellman E: Urogenital mesenteric cyst with fallopian tubal features. *Arch Pathol Lab Med* **111**: 78-80, 1987
- 17) Lauchlan SC: The secondary mullerian system revisited. *Int J Gynecol Pathol* **13**: 73-79, 1994
- 18) de Peralta MN, Delahoussaye PM, Tornos CS, 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
- 19) Kurtz RJ, Heimann TM, Holt J, et al.: Mesenteric and retroperitoneal cysts. *Ann Surg* **203**: 109-112, 1986
- 20) Burkett JS and Pickleman J: The rationale for surgical treatment of mesenteric and retroperitoneal cysts. *Am Surg* **60**: 432-435, 1994
- 21) 森山初男, 佐藤哲郎, 野口 剛, ほか: 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* **65**: 743-746, 2005

(Received on May 11, 2009)

(Accepted on July 3, 2009)