

## 膀胱 Endocervicosis/Endosalpingiosis の 1 例

種田 建史<sup>1</sup>, 大年 太陽<sup>1</sup>, 小林 憲市<sup>1</sup>, 真殿 佳吾<sup>1</sup>  
 桃原 実大<sup>1</sup>, 今村 亮一<sup>1</sup>, 高田 晋吾<sup>1</sup>, 松宮 清美<sup>1</sup>  
 岡 一雅<sup>2</sup>, 辻本 正彦<sup>2</sup>

<sup>1</sup>大阪警察病院泌尿器科, <sup>2</sup>大阪警察病院病理科

ENDOCERVICOSIS/ENDOSALPINGIOSIS  
 OF THE BLADDER : A CASE REPORT

Takeshi OIDA<sup>1</sup>, Taiyo OTOSHI<sup>1</sup>, Kenichi KOBAYASHI<sup>1</sup>, Keigo MADONO<sup>1</sup>,  
 Chikahiro MOMOHARA<sup>1</sup>, Ryoichi IMAMURA<sup>1</sup>, Shingo TAKADA<sup>1</sup>, Kiyomi MATSUMIYA<sup>1</sup>,  
 Kazumasa OKA<sup>2</sup> and Masahiko TSUJIMOTO<sup>2</sup>

<sup>1</sup>The Departments of Urology, Osaka Police Hospital

<sup>2</sup>The Departments of Pathology, Osaka Police Hospital

Endocervicosis/ endosalpingiosis of the bladder is a very rare benign condition, with a total of 34 documented cases found in the literature. Herein, we report a 35-year-old woman with suspected bladder cancer following a cystoscopic examination, which revealed a mass on the right posterior bladder wall. Transurethral resection of the lesion was performed, and both pathological and immunohistochemical findings confirmed a diagnosis of endocervicosis/ endosalpingiosis. Recurrence was seen 6 months later in a follow-up cystoscopic examination and a partial cystectomy was performed. Since endocervicosis/ endosalpingiosis tends to recur, a partial cystectomy is the best therapeutic option for patients with persistent symptoms or recurrence.

(Hinyokika Kiyō 59 : 175-177, 2013)

**Key words :** Mullerianosis, Bladder tumor, Partial cystectomy, Endocervicosis, Endosalpingiosis

緒 言

膀胱 endocervicosis/endosalpingiosis は muller 管由来の組織が膀胱に認められるもので、1982年に Steele と Byrne によって初めて報告された<sup>1)</sup>。われわれが調べた限り現在までに世界で34例の報告例がある。今回われわれは、膀胱に発生するきわめて稀な疾患である膀胱 endocervicosis/endosalpingiosis の 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 : 35歳, 女性

主訴 : 膀胱内腫瘍精査

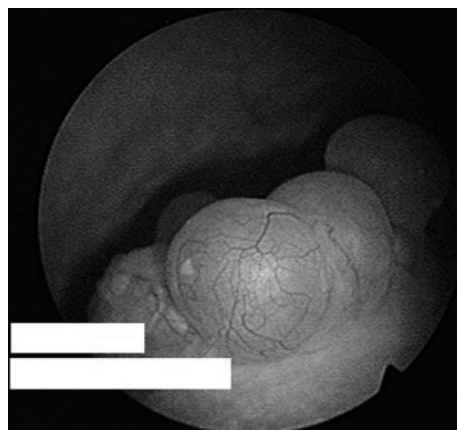
既往歴 : 2004年, 子宮筋腫に対して核出術, 卵巣囊腫に対して腫瘍摘出術施行

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2008年10月婦人科健診の経膈超音波検査にて膀胱内腫瘍を指摘され当科紹介受診となった。

検査所見 : 血液検査, 尿検査にて異常所見を認めず, 尿細胞診は class II であった。

膀胱鏡検査 : 右後壁に直径 2 cm の腫瘍性病変を認めた。粘膜は正常様であり, 一部に濾胞性腫瘍を認めた (Fig. 1)。

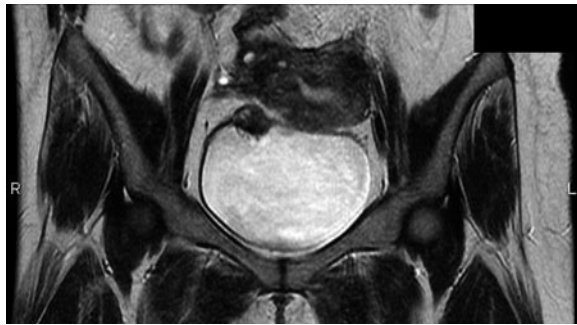


**Fig. 1.** Cystoscopy findings revealed a mass on the posterior bladder wall that was suspected to be bladder cancer.

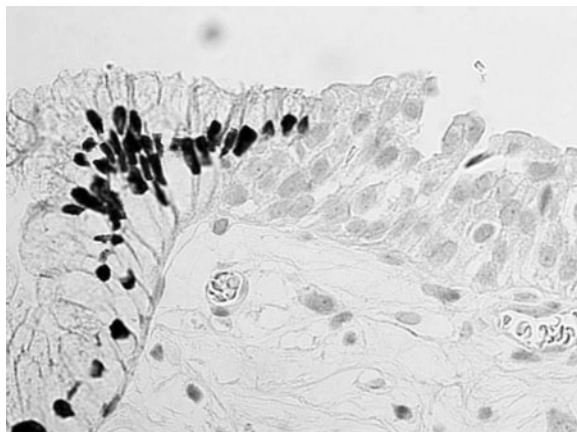
骨盤造影 MRI : 膀胱右後壁に約 2 cm の腫瘍性病変を認め, 周囲脂肪織への浸潤が疑われた (Fig. 2)。

以上から, 典型的な膀胱癌の所見とは異なるものの悪性疾患の可能性を否定できないため, 2008年11月 TUR-BT を施行した。

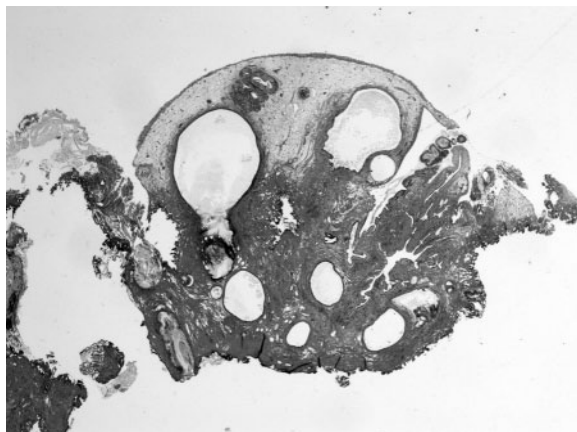
病理組織所見 : 筋層内に嚢胞状構造と腺管構造を認め (Fig. 3), 上皮には卵管由来の繊毛を有する上皮と子宮頸管由来の粘液産生性単層円柱上皮を認めた。免



**Fig. 2.** Pelvic magnetic resonance imaging (MRI) showed a 2 cm mass on the right posterior bladder wall, which suggested a tumor in the muscle layers of the urinary bladder.



**Fig. 3.** The histologic features of müllerian lesions reflect either the endocervix, with mucinous glandular epithelium, or fallopian tube, with ciliated cells admixed with mucous-secreting cells.



**Fig. 4.** The glands were positive for estrogen receptor (ER) in immunohistochemical findings and the histological diagnosis was müllerianosis.

疫組織染色では子宮頸管上皮・卵管上皮が estrogen receptor (ER) 陽性であった (Fig. 4)。以上の所見から Müller 管由来の腫瘍性病変である endocervicosis/endosalpingiosis と診断した。

経過：退院後も定期的な膀胱鏡検査による経過観察を行っていたが、2009年6月に再発を疑う浮腫性病変を認めた。経過観察の方針とするも増大傾向を認め、下腹部痛も認めたため追加治療として2010年2月、膀胱部分切除を施行した。術中所見では腫瘍と周囲組織との間に明らかな連続性や強固な癒着は認めなかった。病理組織所見は TUR-BT と同様 endocervicosis/endosalpingiosis であった。術後、下腹部痛は消失し、約32カ月再発を認めず経過している。

## 考 察

膀胱 endocervicosis/endosalpingiosis は、膀胱筋層内に子宮由来の組織を認めるきわめて稀な良性疾患である。膀胱に発生する Müller 管由来の腫瘍性病変は、子宮内膜由来の endometriosis、子宮頸管由来の endocervicosis、卵管由来の endosalpingiosis の3つに大別され、これらが膀胱に発生したものをまとめて müllerianosis と呼んでいる。

Müllerianosis の発生要因には現在いくつかの説が提唱されており、化生説と移植説が有力である。Smith らが16例の膀胱 müllerianosis を検討したところ10例に帝王切開などの腹部手術の既往があったことは、移植説を支持する<sup>3)</sup>。自験例は子宮と卵巣の手術歴を有していた。いずれにせよ endometriosis と同様に endocervicosis、endosalpingiosis もまた明らかな発生原因は不明であり、endometriosis と比較して endocervicosis/endosalpingiosis の発生が少ないことも原因は不明である。

膀胱 endocervicosis、endosalpingiosis は、1982年に Steele と Byrne によって2例が初めて報告され、現在までに自験例を含めて34例の報告があるが、膀胱外発生の報告はない<sup>1)</sup>。また、今までの報告では endometriosis に含まれて報告されている可能性もあり、De Hoop らは腹膜発症例の endometriosis の35.1%に endosalpingiosis が含まれていたとしている<sup>2)</sup>。患者は全例が女性で年齢は19～67歳、75%が40～50代と膀胱 endometriosis に類似している。症状は骨盤痛、血尿、月経困難などが挙げられる。病理学的な特徴として粘液性腺上皮を含む子宮頸内膜、もしくは絨毛細胞や粘液産生細胞を含む卵管内膜が挙げられ、endometriosis と鑑別される。さらに、免疫化学染色においてビメンチン、サイトケラチン (CAM 5.2)、CA 19-9、OC 125、エストロゲン・プロゲステロンレセプターなどが陽性となることも大きな特徴である。

鑑別疾患は、プルン巢、腺性膀胱炎、膿毒性膀胱炎、腎性腺腫などの良性疾患や、高分化型腺癌、原発性粘膜腺癌などが挙げられる。悪性疾患との鑑別において、細胞の異型や有糸分裂を認めないことは高分化型腺癌との鑑別に役立つが、正常粘膜下に存在するた

め原発性粘膜腺癌との鑑別は困難となることがある。悪性化に関しては, Al-Izzi らが膀胱 mullerianosis を背景に類内膜腺癌が発生したことを報告しており<sup>6)</sup>, その他にも淡明細胞癌との関連などが示唆されているが<sup>7)</sup>, いずれも確証は得られていない。

治療法に関して報告例をまとめると, まず TUR を施行して診断が確定すれば経過観察が可能と考えられる。しかし本症例と同様に多くの症例で病変が筋層から周囲脂肪組織まで及んでおり, TUR で完全に切除するのは困難である可能性が示唆されている<sup>7)</sup>。34例のうち再発の報告例はないが, 本症例のように残存腫瘍が増大し, 症状を有する症例では膀胱部分切除を考慮する必要があると考える。手術以外の治療法として LH-RH agonist によるホルモン治療を施行されたが無効であったという報告を 1 例認め, 手術以外の治療が推奨されている報告はない。自験例では膀胱部分切除術後, 再発を認めず症状も消失しており良好な経過をたどっている。

## 結 語

今回われわれは膀胱に発生するきわめて稀な良性疾患である膀胱 endocervicosis/endosalpingiosis の 1 例を経験した。

## 文 献

- 1) Peterson RO, Sesterhenn IA, Davis CJ, et al.: Urologic Pathology 3rd edition: 205
- 2) 荒井好明, 大久保雄平, 三木 誠, 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
- 3) Smith C, Sabet L, Izawa JI, et al.: Management of endosalpingiosis of urinary bladder. Urology **64**: 1031 e15-17, 2004
- 4) Preusser S, Diener PA, Schmid HP, et al.: Submucosal endocervicosis of the bladder: an ectopic, glandular structure of Mullerian origin. Scand J Urol Nephrol Suppl **42**: 88-90, 2008
- 5) Spencer SL, Rubin MA, Hussain H, et al.: Complete transurethral resection of bladder endocervicosis. J Urol **165**: 524, 2001
- 6) Al-Izzi MS, Horton LWL, Kelleher J, et al.: Malignant transformation in endometriosis of the urinary bladder. Histopathology **14**: 191-198, 1994
- 7) Ozel B, Amezcua C, Ballard C, et al.: Endocervicosis of the bladder. J Reprod Med **50**: 723-726, 2005
- 8) Oliva E, Amin MB, Jimenez R, et al.: Clear cell carcinoma of the urinary bladder. Am J Surg Pathol **26**: 190-197, 2002
- 9) Koren J, Mensikova J, Mukensnabl P, et al.: Mullerianosis of the urinary bladder: report of a case with suggested metaplastic origin, Virchows Arch **449**: 268-271, 2006
- 10) Joseph B, Kumar M, de Bolla AR, et al.: Symptomatic bladder endocervicosis: does it need surgery? Urol Int **79**: 86-89, 2007
- 11) Edmondson JD, Vogeley KJ and Howell JD: Endosalpingiosis of bladder. J Urol **167**: 1401-1402, 2002
- 12) Heretis J, Stamatiou K, Papadimitriou V, et al.: Endocervicosis of the bladder: report of a case and review of the current literature. Int J Clin Exp Pathol **2**: 91-94, 2009

(Received on May 16, 2012)

(Accepted on October 23, 2012)