

Wunderlich 症候群に合併した 膀胱エンドメトリオーシスの1例

東京医科大学泌尿器科学教室 (主任 : 三木 誠教授)

穴戸 俊英, 辻野 進, 大野 芳正, 石橋啓一郎
続 真弘, 尾山 博則, 金 泰正, 三木 誠

A CASE OF VESICAL ENDOMETRIOSIS ASSOCIATED WITH WUNDERLICH SYNDROME

Toshihide SHISHIDO, Susumu TSUJINO, Yoshio ONO, Keiichiro ISHIBASHI,
Masahiro TSUZUKI, Hironori OYAMA, Taisei KIM and Makoto MIKI
From the Department of Urology, Tokyo Medical College

A case of vesical endometriosis associated with unilateral renal agenesis and uterus didelphys (Wunderlich syndrome) is reported. A 20-year-old unmarried woman visited the gynecologic department with dysmenorrhea. She was referred to us because a bladder mass was detected on abdominal ultrasonography. She had no episode of gross hematuria. Cystoscopy revealed a finger tip-sized cystic mass dark red to dark blue in color. Computerized tomography and magnetic resonance imaging demonstrated right renal agenesis and uterus didelphys. The mass was located at the ureterovesical pouch and protruded into the bladder. Partial cystectomy, right hysterectomy and right salpingo-oophorectomy were performed. Histopathological diagnosis was endometriosis. The patient was treated with 400 mg danazol for 6 months has had no recurrence and regular menstruation.

(Acta Urol. Jpn. 43 : 363-365, 1997)

Key words : Vesical endometriosis, Wunderlich syndrome

緒 言

膀胱エンドメトリオーシスは必ずしも珍しくはない。しかし片側無形成腎と溜血腫を伴う重複子宮、いわゆる Wunderlich 症候群¹⁾に合併した膀胱エンドメトリオーシスは珍しい。今回その1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 : 20歳女性 (未婚)

主訴 : 膀胱内腫瘍

家族歴 : 特記すべきことなし

既往歴 : 11歳時腎盂腎炎, 初潮は13歳。

月経周期は28日, 7日の持続。妊娠, 腹部手術の既往なし。

現病歴 : 数カ月前より続く月経困難を主訴に当院産婦人科で受診し, 腹部エコーにて膀胱内に突出する腫瘍を認めたため, 1994年4月25日に当科を紹介された。なお, 月経に伴う血尿は認められなかった。

現症 : 体格中等度, 栄養良。胸・腹部, 外性器に理学所見上異常なし。

尿検査 : 比重1.025, pH 6.5, 蛋白 (-), 糖 (-), 白血球 1~2/hpf, 赤血球 1/1~2 hpf, 尿一般細菌培

養陰性。

尿細胞診 : Class II。

膀胱鏡検査 : 右後壁に示指頭大広基性で表面が一部嚢胞状の腫瘍を認め, 一部暗赤色および暗青色を呈していた。右尿管口は不明であった。なお, 月経時に再度膀胱鏡検査を行ったが全体的にやや浮腫状にみえ, 一部の嚢胞がやや黒色を呈した以外著変なかった。

血液検査 : 血算 生化学に異常なし。腫瘍マーカーは CA19-9 < 1.0 U/ml (正常値 25 U/ml 以下) と正常であったが, CA125 は 46.7 U/ml (正常値 40 U/ml 以下) と軽度上昇していた。

画像診断 : KUB にて, 右腎陰影は不明で, 左腎は 14.5×7.0 cm と代償性に腫大していた。IVP では右腎陰影は認められず, 膀胱右側上縁に陰影欠損を認めた (Fig. 1)。また骨盤 CT では重複子宮が確認された。MRI では膀胱子宮窩から膀胱内部に突出する 20 mm 大の腫瘍を認めた (Fig. 2)。^{99m}Tc-DMSA による腎シンチグラムでは, 右腎への取り込みはまったく認められなかった。子宮卵管造影では右頸管の閉塞を認め, 盲角子宮が疑われた。以上より, 右腎欠損と重複子宮いわゆる Magee の分類Ⅱ型²⁾に合併した膀胱エンドメトリオーシスと診断し, 入院の上1994年6月27日に膀胱部分切除術および右側子宮切除術を施行し



Fig. 1. IVP shows the defect on the right side of the bladder and no right renal image.



Fig. 2. MRI shows the tumor extending into the bladder from the uterovesical pouch.

た。

摘出標本と病理学的所見：腫瘍の摘出標本は、大きさ $30 \times 28 \times 20$ mm, 断面は灰白色を呈し一部嚢胞状であった。病理組織標本では、主として筋層内に endometrioid stroma を伴った腺管構造がみられた。固有層では特有の間質を欠き、腺管のみの病変が多

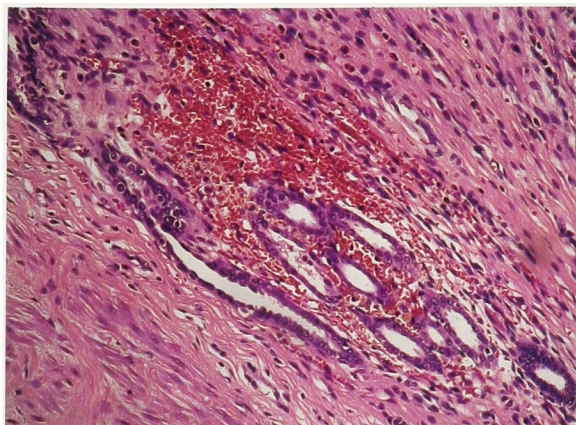


Fig. 3. Endometrial glands and stroma seen in the muscle layer (H-E).

く、隆起部においては stroma が明らかで、endometriosis が明瞭であった (Fig. 3)。摘出子宮とその付属器の大きさは前者が $50 \times 30 \times 20$ mm, 後者は $50 \times 50 \times 20$ mm で cystic lesion を認め、一部は follicular cyst であった。また子宮内部には溜血腫を有していることから Wunderlich 症候群に合併した膀胱エンドメトリオーシスと考えられた。

術後、抗ゴナドトロピン剤 (Danazol 400 mg 分2/day) の内服治療を6カ月間行ない、現在まで症状の再燃および再発を認めておらず、月経周期も順調である。

考 察

子宮内膜組織が異所性増殖を示すエンドメトリオーシスは卵巣・腹膜・子宮仙骨靱帯など種々の部位に生じ、膀胱に生じるのは約1%といわれている³⁾。多くは成熟女性に発生し、月経周期に伴う膀胱刺激症状や血尿、下腹部痛を主症状とする疾患で、診断はこれらの症状と特徴的な膀胱鏡所見ではほぼ確定する。また、馬場ら⁴⁾は術前の臨床診断には頻回の尿細胞診および膀胱の洗浄細胞診による endometrial cell の検索が有用であると述べているが今回は検出しなかった。

われわれの検索しえた範囲では本邦での膀胱エンドメトリオーシス報告例は86例あり、自験例は87例目にあたる。発症年齢は13~65歳、平均36歳であった。症状と月経周期について記載のあるもの74例中66例に月経との関係を認めた。そのうち54例は膀胱刺激症状であった。本症でよく知られている、月経に伴う血尿は25例と意外に少数であった。自験例でも月経時に血尿は認めなかった。発生部位では記載のあるもの79例中後壁(後三角部を含む)が44例(55.7%)と多く、ついで三角部が25例(31.6%)であった。

本邦例での腹部手術の既往については、既往の有無の記載のあるもの59例中、既往ありが44例(74.5%)を占め、そのうち産婦人科的手術が37例(84%)と最

多であった。

診断には臨床症状および経時的な膀胱鏡検査が重要で、月経時に腫瘤の増大 充血・青みを帯びた黒褐色の嚢胞を示せば容易である。経尿道的生検は、表層のみの検索にとどまることが多いため確実な診断法ではないとの意見が多い。

本邦の膀胱エンドメトリオーシスの治療法としては、腫瘤切除を含む膀胱部分切除が70%を占めており、ついでホルモン療法+膀胱部分切除が10%であった。TUR は、腫瘤が膀胱外から膀胱内に浸潤する性格上穿孔する恐れがあるため禁忌とされている⁵⁾ また、偽妊娠療法 (estrogen+gestagen) などのホルモン療法も広く行われてきたが、最近では Danazol や LH-RH アナログによる治癒例も報告されている。しかし、これらのホルモン療法は進行したエンドメトリオーシスに対しては限界があり、手術療法との併用が望ましく Dmowski⁶⁾ は術前の Danazol 投与の有用性を説いている。その理由として症状の軽減、手術範囲の縮小、癒着の易剥離性をあげている。一般に膀胱エンドメトリオーシスは後壁に発生することが多く、MRI 等の画像にて子宮との癒着が考えられる場合には、術前からの Danazol 投与が望ましいと考えられる。

エンドメトリオーシスの発生については多くの説があり、Müller 管や Wolff 管由来とする embryonic rest theory、腹膜などの上皮化生によるとする metaplastic theory、子宮内膜の腹腔内逆流、手術による移植・浸潤 転移によるとする migratory theory などがある。Sampson ら⁷⁾ は月経血の腹腔内への逆流により腹膜に implantation することで発生すると提唱しており、多くの人に受け入れられている。しかし無月経の Turner 症候群⁸⁾ や精巣摘除後の男性にホルモン療法を施行したところ発生したとの報告もあり⁹⁾、エンドメトリオーシスの発生を一元的に説明するのは困難のようである。子宮奇形を伴うエンドメトリオーシスの発生に関し Olive ら¹⁰⁾ は、子宮内膜の機能が保たれていることや卵管が開通していること、月経血の腹腔内逆流があることが重要な因子であると述べており、子宮溜血腫や腔血腫が存在すればその頻度は高くなると指摘している。よって、この説に従えば自験例では妊娠や手術の既往がなく、右頸管の閉塞および溜血腫が存在することから、月経血の腹腔内逆流に起因する発生が示唆される。そして自験例のような一側盲角子宮 溜血腫の存在する Wunderlich 症候群ではエンドメトリオーシスの合併率は高くなると考えられる。しかし後藤ら¹¹⁾ は一側無形成腎と子宮奇

形 (この症例では双角子宮) に合併した尿路エンドメトリオーシスを第1例目として報告しており、われわれも明かな記載のあるものは検索しえなかった。

結 語

子宮奇形に伴うエンドメトリオーシスは比較的多くみうけられる。しかし、一側無形成腎と重複子宮を伴う、膀胱に発生したエンドメトリオーシスはきわめて稀である。

本文の要旨は、第502回日本泌尿器科学会東京地方会において発表した。

文 献

- 1) Wunderlich VM: Seltene Variante einer Genitalmißbildung mit Aplasie der rechtnennier. Zbl Gynak **98**: 559-562, 1976
- 2) Magee MC, Lucey DT and Fried FA: A new embryologic classification for uro-gynecologic malformations: The syndromes of mesonephric duct induced Mullerian deformities. J Urol **121**: 265-267, 1979
- 3) 吉田 修, 小柳和彦, 三宅弘治 編. 西澤 理著: 婦人泌尿器科学. 図説泌尿器科学講座メジカルビュー社 **5**: 243-244
- 4) 馬場志郎, 藪崎 昇, 小田島邦男, ほか: 膀胱エンドメトリオーシスの尿細胞診所見. 臨泌 **37**: 345-348, 1983
- 5) 森田 隆, 木村行雄, 西澤 理, ほか: 膀胱エンドメトリオーシスの1例. 臨泌 **35**: 1011-1014, 1981
- 6) Dmowski WP and Cohen MR: Antigonadotropin (danazol) in the treatment of endometriosis. Am J Obstet Gynecol **130**: 41-48, 1978
- 7) Sampson JA: The development of the implantation theory for the origin of peritoneal endometriosis. Obstet Gynecol **50**: 597-620, 1945
- 8) Press MR, Sosmonski JR, Mathur RS, Williamson HO: Pelvic endometriosis and turner's syndrome. Am J Obstet Gynecol **144**: 474-476, 1982
- 9) Olikier AJ and Harris AE: Endometriosis of the bladder in a male patient. J Urol **106**: 858-859, 1971
- 10) David L Olive and David Y Henderson: Endometriosis and Mullerian anomalies. Obstet Gynecol **69**: 412-415, 1987
- 11) 後藤百万, 吉川羊子, 三宅弘治, ほか: 片側無形成腎, 双角子宮を伴った若年性膀胱エンドメトリオーシスの1例. 泌尿紀要 **37**: 915-918, 1991

(Received on February 22, 1996)

(Accepted on March 5, 1997)