

巨大多房性前立腺嚢胞腺腫に対して 腹腔鏡下骨盤内嚢胞摘除術を行った1例

西崎 広典¹, 花咲 毅¹, 松尾 勇樹¹, 田中 亘¹
田口 元博¹, 嶋谷 公宏¹, 長澤 誠司¹, 山田 祐介¹
呉 秀賢¹, 兼松 明弘¹, 野島 道生¹, 山崎 隆²
廣田 誠一², 山本 新吾¹

¹兵庫医科大学泌尿器科, ²兵庫医科大学病理診断科

A CASE OF GIANT MULTILOCLAR PROSTATIC CYSTADENOMA RESECTED BY LAPAROSCOPIC PELVIC CYSTECTOMY: A CASE REPORT

Kosuke NISHIZAKI¹, Takeshi HANASAKI¹, Yuki MATSUO¹, Wataru TANAKA¹,
Motohiro TAGUCHI¹, Kimihiro SHIMATANI¹, Seiji NAGASAWA¹, Yusuke YAMADA¹,
Shuken GO¹, Akihiro KANEMATSU¹, Michio NOJIMA¹, Takashi YAMASAKI²,
Seiichi HIROTA² and Shingo YAMAMOTO¹

¹The Department of Urology, Hyogo College of Medicine

²The Department of Surgical Pathology, Hyogo College of Medicine

A 60-year-old man visited our hospital to treat a large cystic mass in the pelvis which had been found by abdominal ultrasonography in December 201X. Computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) showed a multilocular cyst with a maximum diameter of about 10 cm. CT-guided drainage and sclerotherapy with minocycline reduced the size of tumor by 40%, but symptoms such as difficulty of defecation and urinary frequency appeared a year and a half later due to re-enlargement of the cysts. Laparoscopic resection of the multilocular cysts was performed, and all cysts were removed almost completely using transrectal ultrasonography. The multilocular cyst was positive for NKX3.1 by immunohistochemical staining, and was diagnosed as a giant multilocular prostatic cystadenoma. After surgery, the symptoms such as difficulty of defecation and urinary frequency were relieved promptly. One year after the surgery, the patient was free from recurrence of the disease.

(Hinyokika Kiyo 68 : 301-305, 2022 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_68_9_301)

Key words : Prostate, Giant multilocular cystadenoma, Laparoscopic surgery

緒 言

巨大多房性前立腺嚢胞腺腫は稀な前立腺良性腫瘍である。このたび腹腔鏡下に嚢胞切除術を施行した巨大多房性前立腺嚢胞腺腫を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者 : 60歳代, 男性

主 訴 : 骨盤内腫瘍の精査

手術歴 : 10歳 虫垂炎 50歳 鼻中隔彎曲症

家族歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 201X年12月に健診の腹部超音波で骨盤内に巨大多房性嚢胞を指摘され受診。排尿, 排便障害は認めず。

初診時現症 : 身長 172.5 cm, 体重 84.7 g, 血圧 128/81 mmHg, 心拍数60回/分, 体温 36.4°C。直腸診で巨大嚢胞は触知可能, 腹部からの触診では異常は認

めない。

初診時検査所見 : 血液一般, 生化学検査, 尿検査に

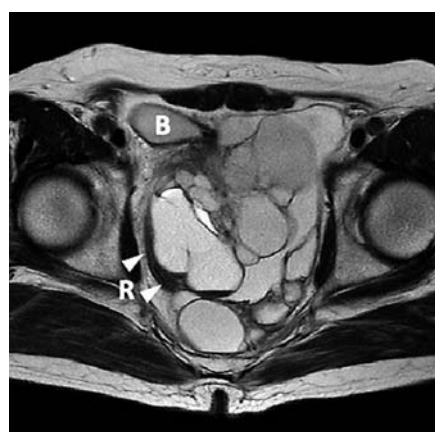


Fig. 1. MRI shows a multilocular cyst with a maximum diameter of 10 cm, with the bladder (B) deviated to the ventral head and the rectum (R; arrows) to the right side.

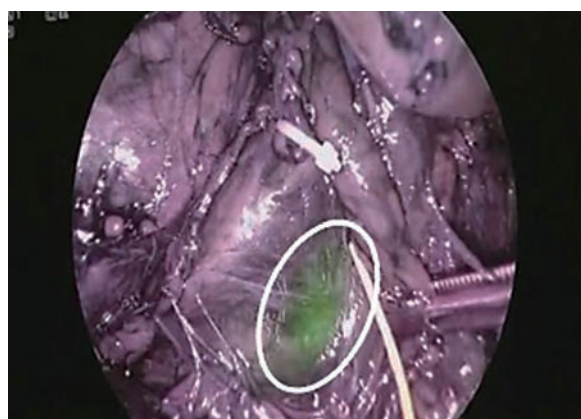
異常は認めなかった。腫瘍マーカーは PSA 3.32 ng/ml, CA19-9 5.6 U/ml, CEA 3.4 ng/ml といずれも基準値内であった。

画像所見：MRI にて 14.0×10.8×11.0 cm の多房性嚢胞を認め、膀胱は腹頭側へ、直腸は右側へ偏移していた (Fig. 1)。胸部 CT では骨盤内に MRI で認められた同様の所見を認めるも、胸部および上腹部には異常は認めなかった。

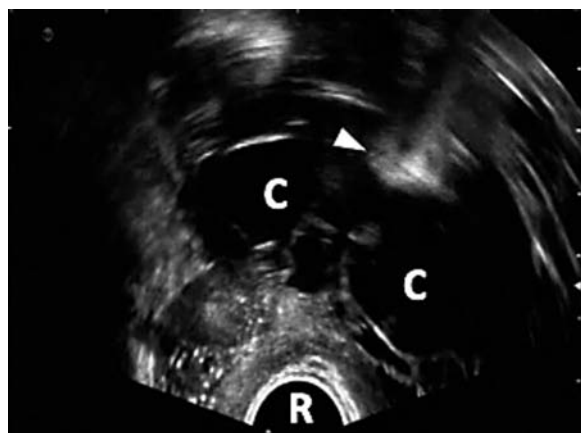
経過：良悪性の判断と内容液の性状評価を目的とし、保存的治療として直腸より距離のあるもっともサイズが大きな嚢胞 2 カ所に対して CT ガイド下ドレナージおよびミノマイシン硬化療法を行った。嚢胞内容液は黄色透明で細胞診陰性、白血球や精子は認めなかった。PSA (3.3 ng/ml), CA19-9 (38, 578 U/ml) が上昇していた。穿刺後 1 カ月で嚢胞は約 4 cm に縮小したが、約 1 年半後、硬化療法を行った嚢胞も再び増大し多房性嚢胞も初診時とほぼ同じサイズに増大、さらに排尿排便障害を来たして来たため、腹腔鏡下嚢胞摘除術を施行した。

手術所見：腹腔鏡下手術用ポートは、臍部に E・Z アクセス[®]、右側に 12 mm ポート、左側に 5 mm ポートをそれぞれ E・Z アクセス[®]から 7 cm 離して留置した。左尿管が嚢胞により腹側正中側に偏移していたため、腹腔鏡下手術開始直前に左尿管に NIRCTM 蛍光尿管カテーテルを留置した。これにより術中必要時に近赤外線カメラにより左尿管の走行が視認することができ (Fig. 2a)、尿管を損傷することなく嚢胞から剥離することが可能であった。さらに、常に経直腸超音波でモニターしながら膀胱や直腸および鉗子先端を監視することにより臓器損傷を回避しながら嚢胞を可能な限り切除できるよう、手術を行った (Fig. 2b)。

まず嚢胞による腹腔内の癒着を処理して、左精管と左内鼠径輪を同定し、腹膜を切開して恥骨が確認できるまで嚢胞の周囲を展開した。経直腸超音波でモニターしながら、嚢胞を穿刺し虚脱させて嚢胞壁を切除する操作を繰り返し行った。切除した嚢胞壁は順次 E・Z アクセスから体外に取り出し、経直腸超音波で

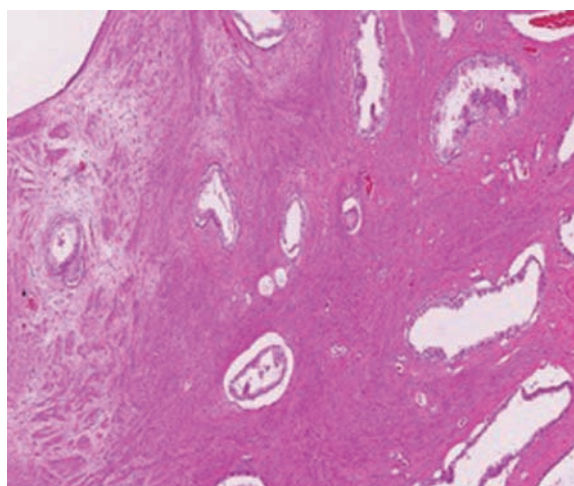


a



b

Fig. 2. a. Green fluorescent ureteral catheter (circled) was identified by near infrared ray camera. b. Intraoperative navigation using transrectal sonography to avoid visceral injury; C: multiocular cysts, R: rectum, arrows: tip of vessel sealing forceps.



a



b

Fig. 3. Pathological findings of prostatic cystadenoma. a. HE stain, ×100. b. NKX3.1, ×100.

多房性嚢胞がほぼ完全に切除できたことを確認して手術を終了した。手術時間は8時間18分、出血量は少量であった。嚢胞増大の影響で下行結腸、S状結腸、膀胱などの解剖を把握することが容易ではなく、これら

の臓器を損傷しないように細心の注意を払わなければならなかった。また嚢胞を穿刺・吸引し嚢胞壁を切除し分割して摘出したため、かなりの手術時間を要した。

病理所見：嚢胞壁は膠原線維性組織からなり、嚢胞を裏打ちする上皮は腺上皮細胞と基底細胞の二相性が保持され、細胞異型はみられなかった。免疫染色にてPSAは弱陽性であったが、PSAPおよびNKX3.1が陽性であったため、前立腺由来と判断し、巨大多房性前立腺嚢胞腺腫と診断した。悪性所見は認めなかった (Fig. 3)。

術後経過：術後排尿排便障害はすみやかに改善し、術後1年経過したMRIでも嚢胞の再発は認めていない (Fig. 4)。

考 察

巨大多房性前立腺嚢胞腺腫は前立腺に由来する稀な良性腫瘍である。最初の報告は比較的最近で1990年の

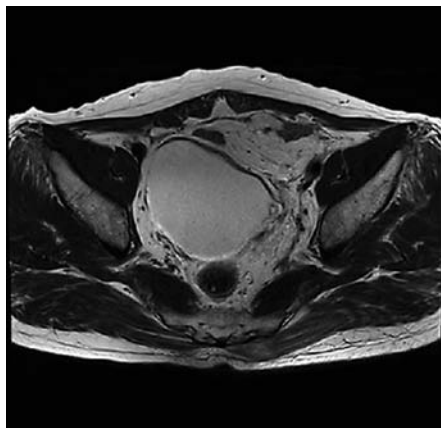


Fig. 4. One year after the surgery, MRI shows the patient is free from recurrence of the disease.

Table. Case reports of giant multilocular prostatic cystadenoma in the literature

Authors	Reported year	Age	Symptoms	Size (cm)	PSA (ng/ml)	Surgery
Watanabe	1990	80	Urinary retention	11	8.2	Open
Maluf	1991	28	Urinary retention	19	—	Open
Maluf	1991	38	Dysuria	45	—	Open
Lim	1993	64	Dysuria	17	—	Open
Levy	1993	56	Dysuria	13	—	Open
Morimoto	1994	45	Urinary retention	5.5	6	Open
Kirsch et	1996	65	Dysuria	12.5	30.2	Open
Choi	2000	57	Dysuria	15	—	Open
Seong	2002	48	Pollakisuria	8	68.2	Open
Matsumoto	2002	35	Gross hematuria	9	14.4	Open (cystoprostatectomy)
Rusch	2002	30	Urinary retention	15	—	Open
Rusch	2002	41	Urinary retention	15	—	Open
Datta	2003	71	Urinary retention	12	—	Open (cystoprostatectomy)
Allen	2003	52	Dysuria	14	—	Open
Hauck	2004	43	Urinary retention	14	6	Open
Ganesan	2006	28	Dysuria	9.9	1.6	Open
Tuziak	2007	42	Urinary retention	15	0.04	Open
Park	2007	61	Urinary retention	9	38.2	Open
Chowdhury	2009	35	Dysuria	20	—	Open
Lee	2010	71	Urinary retention	10	—	Open (cystoprostatectomy)
Olgun	2012	23	Dysuria	9	20.2	Open
Baad	2015	55	Urinary retention	11	9.8	Open
Rahman	2016	74	Dysuria	11.6	20.5	Laparoscopic
Nakamura	2018	50	Dysuria	32	—	Open
El-Asmar	2019	76	Dysuria	12	11.6	Open
Teixeira	2019	62	Urinary retention	15	3	Open
Chen	2020	71	Dysuria	12	3.96	Open
Fan	2020	65	Dysuria	8.2	5	Robot assisted laparoscopic
Kong	2020	16	Dyschezia	8.8	17	Laparoscopic
Saadi	2020	59	Urinary retention	13	3	Open
Our case	2021	60	Dysuria	10.3	3.3	Laparoscopic

Watanabe ら¹⁾の報告に始まるが、それ以来国内外から約30例の症例が報告されている。巨大多房性前立腺嚢胞腺腫はその名の通り前立腺から発生し、多房性嚢胞が骨盤内臓器を圧排しながら膀胱と直腸の間で成長する。原則、前立腺と連続しているが、完全に前立腺から離れて存在していた症例も報告されている²¹⁾。

Nakamura ら²²⁾が集計した23例に自験例を含めた8例を追加した31例(1~28)を集計した(Table)。発症年齢は16~80歳(中央値55歳)であり、あらゆる年齢で発症する可能性がある。下部尿路症状がほとんどすべての症例で認められているが、その他の症状としては、血尿、腹部腫瘍、排便症状、腹痛などが挙げられる。本症例は健診での腹部超音波で発見された初診時当初は嚢胞に関連した症状は認められていなかったが、その後嚢胞の増大に伴って排尿排便困難が認められた。本症例ではPSAは基準値内であったが、なかにはPSAの上昇が見られることもあり、PSAが報告されている症例19例のうち上昇が認められたのは13例(68%)であった(0.04~68.2:中央値8.2 ng/ml)。切除後にPSA値を計測している症例を複数認めたが、それぞれの症例でPSA値は低下を認めていた^{6,22,25)}。切除後フォローアップの1つとしてPSA値を測定することは有用であると考えられる。

鑑別診断としては、前立腺嚢胞、前立腺膿瘍、前立腺肉腫、前立腺嚢胞腺癌、ミューラー管嚢胞、リンパ管腫、嚢胞性奇形腫など後腹膜腔および骨盤腔から生じる様々な嚢胞性病変が含まれる。巨大多房性前立腺嚢胞腺腫は多くの症例で10 cmを超える多房性嚢胞である。このたび集計した31例のなかでは、10 cmを超える症例は23例(74%)であり、平均は13.9 cmであった。MRIでは嚢胞内容液が様々なdensityを示し、またDWI/ADC mapなどで細胞密度が低く良性疾患が示唆される。画像検査では病変の範囲と隣接臓器への浸潤に関する情報は得られるものの、最終診断は組織学的でのみ可能である。

組織学的には、種々の広さの間質を伴い、大小の嚢胞が形成されている。間質は膠原線維性組織からなり、嚢胞を裏打ちする上皮は腺上皮細胞と基底細胞の二相性が保持され、細胞異型はみられない。免疫組織染色でPSA、NKX3.1など前立腺由来であることを示すマーカーが陽性となることが報告されている²⁹⁾。本症例では、免疫染色にてPSAは弱陽性であったが、PSAPおよびNKX3.1が陽性であった。

本症例では診断と保存的治療を目的として、まず最初にミノマイシン注入療法を行ったが、2年弱で再増大を来したことより、有効な手段とは言い難いと考えられる。過去の症例では、ミノマイシン注入療法を行った症例は認められず、全例で外科的切除が施行されているが、膀胱前立腺摘除術または骨盤内臓全摘除

術など過剰治療とも考えられる症例も数例報告されている。多くの症例で開腹術が選択されているが、近年になり本症例のように腹腔鏡下に嚢胞摘除術を行った症例も報告され始めている^{21,27)}。巨大多房性前立腺嚢胞腺腫は多房性嚢胞が骨盤内臓器を圧排しながら成長するため、周囲臓器への癒着などのために外科的切除が容易でない場合も少なくない。膀胱、尿管、直腸損傷などの手術関連の合併症が報告されており、術前には慎重かつ詳細に手術方法を検討する必要がある。本症例では、尿管損傷予防を目的に蛍光尿管カテーテルを使用し、膀胱直腸損傷を回避するために経直腸超音波による術中ナビゲーションを行った。蛍光尿管カテーテルは近赤外線カメラで緑色に発色することで透視することができ、尿管の走行を確認するのに有用であった。経直腸超音波は周囲の臓器損傷を回避するのみでなく、目視で確認できない残存嚢胞を確認する点でも有用であった。

結 語

腹腔鏡下嚢胞摘除術を施行した巨大多房性前立腺嚢胞腺腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告した。

本論文の要旨は、第246回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Watanabe J, Konishi T, Takeuchi H, et al.: A case of giant prostatic cystadenoma. *Hinyokika Kiyo* **36**: 1077-1079, 1990
- 2) Maluf HM, King ME, DeLuca FR, et al.: Giant multilocular prostatic cystadenoma: a distinctive lesion of the retroperitoneum in men: a report of two cases. *Am J Surg Pathol* **15**: 131-135, 1991
- 3) Lim DJ, Hayden RT, Murad T, et al.: Multilocular prostatic cystadenoma presenting as a large complex pelvic cystic mass. *J Urol* **149**: 856-859, 1993
- 4) Levy DA, Gogate PA, Hampel N, et al.: Giant multilocular prostatic cystadenoma: a rare clinical entity and review of the literature. *J Urol* **150**: 1920-1922, 1993
- 5) Morimoto S, Okuno T, Masuda H, et al.: A case of prostatic cystadenoma. *Hinyokika Kiyo* **40**: 629-631, 1994
- 6) Kirsch AJ, Newhouse J, Hibshoosh H, et al.: Giant multilocular cystadenoma of the prostate. *Urology* **48**: 303-305, 1996
- 7) Choi YH, Namkung S, Ryu BY, et al.: Giant multilocular prostatic cystadenoma. *J Urol* **163**: 246-247, 2000
- 8) Seong BM, Cheon J, Lee JG, et al.: A case of multilocular prostatic cystadenoma. *J Korean Med Sci* **13**: 554-558, 1998

- 9) Matsumoto K, Egawa S, Iwabuchi K, et al. : Prostatic cystadenoma presenting as a large multilocular mass. *Int J Urol* **9** : 410-412, 2002
- 10) Rusch D, Moinzadeh A, Hamawy K, et al. : Giant multilocular cystadenoma of the prostate. *AJR Am J Roentgenol* **179** : 1477-1479, 2002
- 11) Datta MW, Hosenpud J, Osipov V, et al. : Giant multilocular cystadenoma of the prostate responsive to GnRH antagonists. *Urology* **61** : 225, 2003
- 12) Allen EA, Brinker DA, Coppola D, et al. : Multilocular prostatic cystadenoma with high-grade prostatic intraepithelial neoplasia. *Urology* **61** : 644, 2003
- 13) Hauck EW, Battmann A, Schmelz HU, et al. : Giant multilocular cystadenoma of the prostate: a rare differential diagnosis of benign prostatic hyperplasia. *Urol Int* **73** : 365-369, 2004
- 14) Ganesan S, Ganesan K, Joshi M, et al. : Giant multilocular prostatic cystadenoma. *J Ultras Med* **25** : 795-798, 2006
- 15) Tuziak T, Spiess PE, Abrahams NA, et al. : Multilocular cystadenoma and cystadenocarcinoma of the prostate. *Urol Oncol* **25** : 19-25, 2007
- 16) Park JP, Cho NH, Oh YT, et al. : Giant multilocular prostatic cystadenoma presenting with obstructive aspermia. *Yonsei Med J* **48** : 554-556, 2007
- 17) Chowdhury MM and Abdulkarim JA : Multilocular cystadenoma of the prostate presenting as a giant pelvic mass. *Br J Radiol* **82** : 200-201, 2009
- 18) Lee TK, Chuang ST, Netto GJ, et al. : Conventional prostatic adenocarcinoma arising in a multilocular prostatic cystadenoma. *Pathol Int* **60** : 413-416, 2010
- 19) Olgun DC, Onal B, Mihmanli I, et al. : Giant multilocular cystadenoma of the prostate : a rare cause of huge cystic pelvic mass. *Korean J Urol* **53** : 209-213, 2012
- 20) Baad M, Ericson K, Yassan L, et al. : Giant multilocular cystadenoma of the prostate. *Radiographics* **35** : 1051-1055, 2015
- 21) Abed El Rahman D, Zago T, Verduci G, et al. : Transperitoneal laparoscopic treatment for recurrence of a giant multilocular prostatic cystadenoma: a case report and review of the literature. *Arch Ital Urol Androl* **88** : 66-67, 2016
- 22) Nakamura Y, Shida D, Shibayama T, et al. : Giant multilocular prostatic cystadenoma. *World J Surg Oncol* **17** : 42, 2019
- 23) Jose M El-Asmar, Charbel Saade, Mohamad Yasser R Dergham, et al. : Multimodality approach to imaging giant multilocular cystadenoma of the prostate. *Radiol Case Rep* **14** : 1117-1122, 2019
- 24) Portugal Teixeira I, Pereira PR, Silva A, et al. : Giant multilocular prostatic cystadenoma, a diagnosis to consider in large pelvic male masses. *Radiol Case Rep* **14** : 1473-1477, 2019
- 25) Chen J, Zhang W, Chen H, et al. : Imaging and clinical features of giant multilocular prostatic cystadenoma. *Medicine (Baltimore)* **9** : 99, 2020
- 26) Fan LW, Chang YH, Shao IH, et al. : Robotic surgery in giant multilocular cystadenoma of the prostate : a rare case report. *World J Clin Cases* **8** : 4215-4222, 2020
- 27) Kong JJ, Li HZ, Zheng KW, et al. : Giant multilocular prostatic cystadenoma in a 16-year-old male with difficulty in defecation : case report and literature review. *Int J Clin Exp Pathol* **13** : 1468-1473, 2020
- 28) Saadi MH, Saadi A and Charkoun M : Prostatic cystadenoma presenting as a large multilocular pelvic male mass. *J Surg Case Rep* **11** : 244, 2020
- 29) Paner GP, Lopez-Beltran A and So JS : Spectrum of cystic epithelial tumors of the prostate. *Am J Surg Pathol* **40** : 886-895, 2016

(Received on February 9, 2022)
 (Accepted on May 2, 2022)