

腹腔鏡下に摘出した後腹膜 Müller 管嚢胞の 1 例

神田 裕佳^{1*}, 増井 仁彦², 恵 謙¹
 福澤 重樹¹, 寺本 祐記³, 橘 充弘³

¹市立島田市民病院泌尿器科, ²大津市民病院泌尿器科, ³市立島田市民病院病理診断科

LAPAROSCOPIC RESECTION OF A RETROPERITONEAL MÜLLERIAN CYST: A CASE REPORT

Yuka KANDA¹, Kimihiko MASUI², Yuzuru MEGUMI¹,
 Shigeki FUKUZAWA¹, Yuki TERAMOTO³ and Mitsuhiro TACHIBANA³

¹The Department of Urology, Shimada Municipal Hospital

²The Department of Urology, Otsu Municipal Hospital

³The Department of Diagnostic Pathology, Shimada Municipal Hospital

A 51-year-old woman had a cystic mass in the retroperitoneal space, below the left kidney, which was incidentally detected at a medical check-up. The size of the mass was 6 cm in diameter, which was similar to that obtained by magnetic resonance imaging 4 years ago. We followed the case and found that the mass was slightly enlarged a year later. Because malignancy could not be ruled out, we performed a laparoscopic tumor excision. Histologically, the cyst was diagnosed as a Müllerian cyst, and there was no evidence of malignancy. Retroperitoneal Müllerian cyst is a rare tumor. Sixteen cases have been reported previously and this is the fourth case of a laparoscopic excision.

(Hinyokika Kiyo 60 : 493-496, 2014)

Key words : Retroperitoneal cyst, Müllerian cyst, Laparoscopic surgery

緒 言

Müller 管嚢胞は男性骨盤内に好発し、剖検では 0.7~1% に認められる¹⁾。しかし後腹膜原発はきわめて稀なケースで、われわれが調べた限りでは自験例を含め18例のみであり、全例が女性であった²⁻⁴⁾。腹腔鏡下に摘出した症例は、自験例以外で3例認めた。

今回われわれは腹腔鏡下に摘出した Müller 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 : 51歳, 女性

主 訴 : 精査目的 (後腹膜腫瘍)

既往歴 : 虫垂炎 (20歳, 虫垂切除術), 帝王切開 (24歳), 子宮筋腫 (46歳, 開腹子宮全摘術, 卵巣温存), 高脂血症。

現 症 : 身長 153.2 cm, 体重 64.4 kg。

尿検査 : 異常なし。

血液生化学検査 : 末梢血の血算・生化学検査に異常なし。各種腫瘍マーカーを測定し, CEA 0.7 ng/ml, AFP 2.4 ng/ml, CA 19-9 5.8 U/ml, CA 125 3.7 U/ml と異常高値を認めなかった。



Fig. 1. Computed tomography showed a cystic mass that was 6 cm in diameter, located below the left kidney.

現病歴 : 2011年6月, 検診超音波検査で左腎下極付近の嚢胞を指摘され当科を受診した。エコー, CT で左腎から離れた左下腹部に 6.0×5.5×4.5 cm 大の表面平滑, 内部均一な嚢胞性腫瘍を認めた (Fig. 1)。当院での画像記録を調べたところ, 約4年前に産婦人科手術のため撮影した骨盤 MRI にも同様の嚢胞が描出されていた (Fig. 2a)。4年前の手術は子宮筋腫に対する卵巣を温存した子宮全摘術で, 記録によれば下腹部正中切開で開腹し周囲に癒着を認めなかったが, 左卵巣に 2 cm 大の嚢胞を認めたことだった。後腹膜腫瘍

* 現 : 聖隷浜松病院泌尿器科

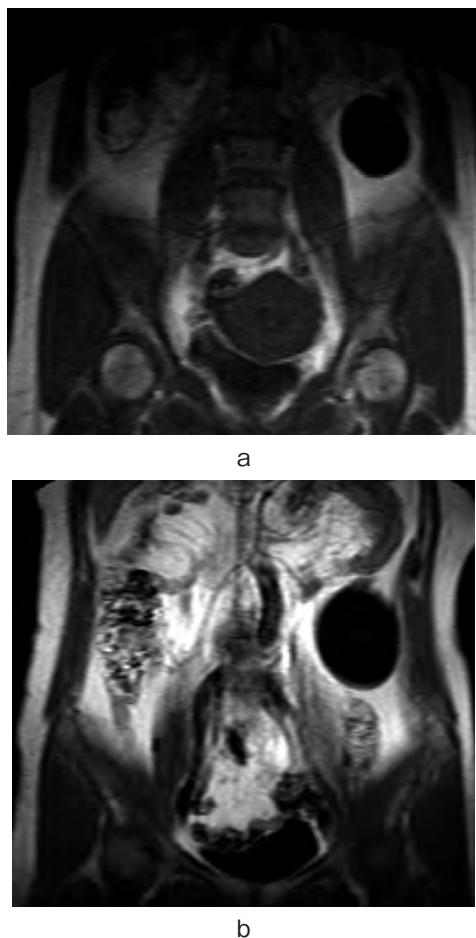


Fig. 2. (a) Magnetic resonance images taken in 2007 (4 years before starting follow up). The size of the mass was 6 cm in diameter and was similar to that in 2011. (b) A year after starting follow up (2012). Magnetic resonance imaging revealed that the mass had enlarged to 8 cm in diameter.

についての記録は認めなかった。画像を比較すると、4年間で嚢胞の大きさに変化はなく無症状であったため、経過観察とした。以降3～4カ月間隔で超音波検査を行っていたところ嚢胞は徐々に増大した。経過観察開始から1年後にMRIを撮影した。境界明瞭、辺縁平滑な嚢胞性腫瘍で、良性腫瘍の可能性も考えられたが、1年前よりも明らかに嚢胞は増大しており、嚢胞腺癌などの悪性腫瘍の可能性が否定できないと判断し、腫瘍摘出の方針となった。

画像所見：左腎下極よりもやや尾側に、境界明瞭、辺縁平滑な8×6×6 cmの単房性嚢胞性腫瘍を認めた(Fig. 2b)。嚢胞壁は薄く均一で造影効果は認めず、周囲臓器との明らかな癒着も認めなかった。

術中所見：2012年12月に腹腔鏡下後腹膜嚢胞摘出術を施行。体位を右側臥位とし、臍の左横に腹直筋を貫くようにカメラポートを設置し、嚢胞を挟み込むように12 mm ポートを2カ所に配置した。腹腔内に腹水、腸管の癒着などは認めず、嚢胞に流入する血管・リン



Fig. 3. Intraoperative finding. There was no peritoneal adhesion. The mass had smooth surface and there was no structure like blood vessels or lymph vessels pouring into the mass.

パ管などの構造物も認めなかった(Fig. 3)。下行結腸を脱転して嚢胞を剥離した。卵巢を始めとする後腹膜臓器および腹腔内臓器と癒着は認めず、剥離は容易であった。標本を腹腔内で回収袋に入れて嚢胞穿刺、内容液を吸引し、創部を延長することなく摘出した。手術時間は2時間38分、出血はガーゼ付着のみの少量にて手術を終了した。

摘出標本：嚢胞内容液は230 ml、無色透明な漿液性の液体であった。内容液を生化学検査に提出したところ、CEA・AFP・CA19-9はすべて正常範囲内であったが、CA125のみ3,065.0 U/ml(血清基準値35 U/ml)と著明高値を示した。細胞診検査では、悪性細胞を認めなかった。肉眼的に、嚢胞内面は平滑で充実性成分は認めなかった。

病理組織学的所見：被覆上皮は繊毛を有する単層円柱上皮で、淡明な細胞質を有する細胞も混在しており、形態学的には卵管上皮に類似していた(Fig. 4)。

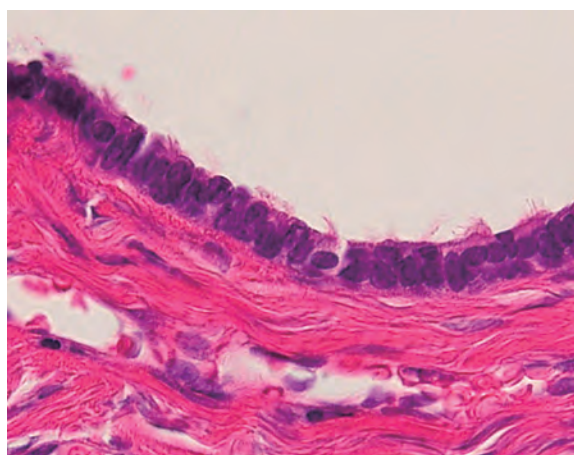


Fig. 4. Surgical specimen. Morphologically, the epithelial cells of the cystic lesion were similar to tubal epithelium (HE staining, ×400).

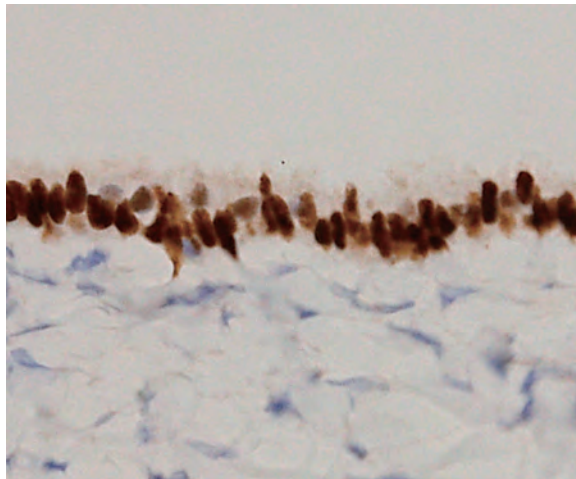


Fig. 5. On immunohistochemical examination, the lining epithelial cells were positive for PAX8. These findings support the diagnosis of Müllerian cyst (Pax8 immunohistochemical staining, $\times 400$).

免疫組織化学染色では、被覆上皮の核に一致して PAX8 がびまん性に陽性であった (Fig. 5). この PAX8 は正常卵管上皮・Müller 管・Wolff 管で陽性となることが知られている⁵⁾. 壊死巣, 充実性病変など, 悪性を疑う所見は認めなかった. 組織学的な特徴, 特徴, および卵巣との連続性を認めなかったために, Müller 管嚢胞と診断した.

術後経過: 術後経過良好にて, 術後 4 日目に退院となった. その後, 約半年間のフォローで, 嚢胞の再発は認めなかった.

考 察

現在までの報告では, 後腹膜 Müller 管嚢胞の罹患年齢は 19~83 歳までと幅広く, 嚢胞径も親指大から最大 45 cm までと多彩であった. 主訴は腹部膨満感・不快感, 腹部腫瘤触知が主であったが, 5 例は無症状で発見されていた (Table 1)²⁻⁴⁾. 組織学的な特徴として, 線毛を有する円柱上皮に覆われており, 部分的に平滑筋束を認め, 卵管水腫と似た組織構造をとるとされ, 過去の症例では加えて免疫組織学的検討が補助的に施行されている⁶⁾. 卵管水腫と異なり, 解剖学的には卵巣に連続しない.

後腹膜 Müller 管嚢胞は, “後腹膜脂肪内に存在し, 他臓器と連続性をもたない嚢胞”であり, 典型的には卵管上皮に類似した上皮を有するとされる⁷⁾. 発生源については, ①迷入 Müller 管組織が肥満やホルモン療法に起因する過剰なエストロゲンの刺激を受けて成長する⁸⁾, ②体腔上皮や腹膜が陥入・遊離して様々な上皮に分化, 異形成する⁹⁾, ③逆行性月経・子宮内膜症・骨盤内手術による異所性内膜組織に由来する⁷⁾, といった説がある. 本症例では帝王切開や子宮全摘出術といった婦人科手術歴があるが, 現在まで報告された 18 例のうち, 婦人科手術歴のあるものは 7 例, ホルモン治療歴のあるものは 2 例だけである. また肥満体型で月経不順の女性に多いとされるが¹⁰⁾, 本症例も肥満体型 (BMI: 27.5 kg/m²) の女性であった.

治療方針の決定にあたっては, 良悪性の鑑別が重要

Table 1. Reported cases of retroperitoneal Müllerian cyst

報告者	発表年	年齢	性別	主訴	手術・ホルモン治療歴	嚢胞径 (cm)	体腔鏡下切除
Steinberg L	1970	19	女	腹部腫瘤	ホルモン療法 (月経不順)	45	
Harpas N	1987	48	女	なし	なし	23	
de Peralta MN	1994	68	女	なし	子宮付属器切除	8	
de Peralta MN	1994	45	女	なし	付属器切除	15	
de Peralta MN	1994	73	女	腹部膨満感	子宮付属器切除	17	
Lee J	1998	47	女	腹部膨満感	ホルモン療法 (月経不順)	25	
Konishi E	2003	35	女	腹部腫瘤	なし	20	
Yohendran J	2004	42	女	腹部腫瘤	なし	13	
Shayan H	2004	36	女	腹部不快感	なし	12	
Angkoolpakdeekul T	2004	66	女	腹部膨満感	子宮付属器切除	18.5	●
唐崎	2005	83	女	左側腹部痛	帝王切開, 子宮切除	7	
Ray M	2005	53	女	腹部膨満感	なし	16	
Park SC	2006	38	女	なし	腎移植	Fist	
Kassab A	2007	80	女	腹部不快感	なし	35	
原田	2007	30	女	腹部腫瘤	なし	17	
Guile M	2007	33	女	骨盤痛, 嘔気・嘔吐・下痢, 尿意切迫感	卵巣嚢腫穿刺	16	
金子	2009	67	女	なし	腹腔鏡下胆嚢摘出術	6	●
自験例	2014	51	女	なし	虫垂炎, 帝王切開, 子宮切除	8	●

となる。

腹部の嚢胞性疾患162例の検討から、腹部にできた嚢胞が悪性である確率は3%, 後腹膜に限れば8%程度であった¹¹⁾。

腹腔内および後腹膜の嚢胞25例を検討した報告で、悪性の可能性のある嚢胞の特徴として「最大径5.5 cm以上・症状があること・石灰化がないこと・境界が不明瞭であること・嚢胞変性/壊死を認めること」といったことが挙げられているが¹²⁾、石灰化を伴う摘出標本から悪性転化傾向を認めた例や¹³⁾、良性腫瘍にもかかわらず腹痛や圧迫感を訴えるなどといった報告例も存在し¹²⁾、画像所見や臨床症状から良悪性を推察するには限界があると考えられる。一般に、充実性成分が造影される場合には悪性病変の存在を疑うが、良性嚢胞性疾患でも内部出血などで一見、充実性腫瘍と誤認する場合がある¹⁴⁾。一方、術前に良性の嚢胞性疾患と画像的に診断し摘出したものの、病理組織学的に悪性所見を認めた報告もあり¹³⁾、画像診断と病理診断が解離してしまう場合が認められた。

また嚢胞内容液からの病変の推定であるが、本症例の場合、内容液中ではCA125のみ著明高値を示した。大橋ら¹⁵⁾の症例でも、後腹膜嚢胞内容液は血清にほぼ等しい成分であったもののCA125のみ著明高値を示したと報告されており、嚢胞がMüller管由来であることを示唆する所見としているが、報告例は少なく定かではない。他にも嚢胞内容液の腫瘍マーカーが上昇していたという報告は認められるが、悪性化とは関連していないと考えられている¹⁶⁾。内容液の細胞診は、悪性所見を有する嚢胞であっても陰性だったとの報告も認めた¹⁷⁾。よって最終的な診断は、嚢胞摘出術を行い、病理学的検査をする必要があると考える。

治療方法を開窓術・穿刺とした場合には再発しやすく、また感染による二次的な手術の必要性が問題である¹⁰⁾。

このように良悪性の判定が難しいこと、穿刺などした場合の再発率の高さから、後腹膜嚢胞は、手術による摘除が推奨されている¹⁸⁾。

結 語

後腹膜Müller管嚢胞に対し腹腔鏡下に摘出術を行った1例を経験した。

文 献

- 狩野武洋, 伊野部拓治, 林 秀樹, ほか: ミューラー管嚢胞の1例. 泌尿器外科 **13**: 799-801, 2000
- 金子 剛, 西本紘嗣郎, 矢内原仁, ほか: 腹腔鏡下に切除した後腹膜Müller管嚢胞の1例. 泌尿器外科 **55**: 753-756, 2009
- Angkoolpakdeckul T, Sornmayura P and Sumritpradit P: Laparoscopic resection of a primary giant retroperitoneal cyst: a case report. Thai J Surg **25**: 53-56, 2004
- Guile M, Fagan M, Simopolous A, et al.: Retroperitoneal cyst of Mullerian origin: a case report and review of the literature. J Pelvic Med Surg **13**: 149-152, 2007
- Wiseman W, Michael CW, Roh MH, et al.: Diagnostic utility of PAX8 and PAX2 immunohistochemistry in the identification of metastatic Müllerian carcinoma in effusions. Diagn Cytopathol **39**: 651-656, 2010
- 原田勝久, 野口 剛, 菊池隆一, ほか: 後腹膜Müller管嚢胞の1例. 日臨外会誌 **68**: 1017-1021, 2007
- de Peralta MN, Delahoussaye PM, Tomos 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
- 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
- Lauchlan SC: The secondary mullerian system revisited. Int J Gynecol Pathol **13**: 73-79, 1994
- Yang DM, Jung DH, Kim H, et al.: Retroperitoneal cystic masses: CT, clinical, and pathologic findings and literature review. Radiographics **24**: 1353-1365, 2004
- Kurtz RJ, Heimann TM, Holt J, et al.: Mesenteric and retroperitoneal cysts. Ann Surg **203**: 109-112, 1986
- Nakashima J, Ueno M, Nakamura K, et al.: Differential diagnosis of primary benign and malignant retroperitoneal tumor. Int J Urol **4**: 441-446, 1997
- 田村祐樹, 安川林良, 河田 昌, ほか: 後腹膜に発生した粘液嚢胞腺腫—Borderline malignancyの1症例—. 松仁会医誌 **29**: 79-85, 1990
- 飯田勝之, 遠藤瑞木, 堤 雅一, ほか: 後腹膜嚢胞性リンパ管腫の1例. 泌尿器外科 **14**: 165-168, 2001
- 大橋正和, 二木昇平, 織田孝英, ほか: 内容液CA125が高値を呈した巨大後腹膜嚢胞. 臨泌 **45**: 684-686, 1991
- 井崎博文, 高橋正幸, 湯浅明人, ほか: 後腹膜漿液性嚢胞に対し腹腔鏡下嚢胞切除術を施行した1例: 泌尿紀要 **55**: 695-698, 2009
- 秋田英俊, 田貫浩之, 岡村武彦, ほか: 後腹膜腔原発, CA19-9陽性Mucinous adenocarcinomaの1例. 泌尿紀要 **49**: 145-147, 2003
- Burkett JS and Pickleman J: The rationale for surgical treatment of mesenteric and retroperitoneal cysts. Am Surg **60**: 432-435, 1994

(Received on March 31, 2014)
(Accepted on June 4, 2014)