

大量の血性腹水を伴ったpolypoid endometriosisの1例

榎園 優香・関根 仁樹・菅 裕美子・森岡 裕彦・寺岡 有子・大森 由里子
定金 貴子・野坂 豪・山崎 友美・古宇 家正・占部 智・平田 英司・工藤 美樹

広島大学病院 産科婦人科

A case of polypoid endometriosis with massive hemorrhagic ascites

Yuka Enokizono・Masaki Sekine・Yumiko Kan・Hirohiko Morioka
Yuko Teraoka・Yuriko Omori・Takako Sadakane・Suguru Nosaka
Tomomi Yamazaki・Iemasa Koh・Satoshi Urabe・Eiji Hirata・Yoshiki Kudo

Department of Obstetrics and Gynecology, Hiroshima University Hospital

Polypoid endometriosisは組織学的に子宮内膜ポリープに類似し、嚢胞部と充実部が混在する腫瘤を形成し悪性腫瘍との鑑別を要する稀な子宮内膜症である。今回、大量の血性腹水を伴った polypoid endometriosis の1例を経験したので報告する。症例は47歳、0妊。1年半前から月経前後の腹部膨満感を自覚していた。2か月前から持続する腹部膨満感を主訴に近医内科を受診し、経腹超音波検査で腹水貯留を指摘された。腹水穿刺で血性腹水を認めため婦人科悪性腫瘍の評価目的に当科紹介となった。造影CT検査で上腹部までおよぶ腹水貯留および右気胸を認めた。骨盤部造影MRI検査で子宮左背側に造影効果を伴う30 mm大の腫瘤を認め、腹膜は全体的に肥厚していた。両側卵巣に異常所見を認めなかった。PET-CT検査で子宮左背側の腫瘤および腹膜に異常集積を認めた。腹水は暗褐色の滲出性で、腹水細胞診では悪性所見を認めず、結核性腹膜炎の除外のため腹水の好酸菌塗抹検査、PCR検査および長期培養検査を施行し、いずれも陰性であった。月経前後に腹部膨満感を認めていた点や気胸を併発している点から子宮内膜症を疑ったが、腹膜癌などの悪性疾患が否定できないため試験開腹術を施行した。腹腔内には血性腹水が6000 mL貯留し、腹膜全体は肥厚し易出血性であった。ダグラス窩腫瘍は黄白色の充実性腫瘍で、両側卵巣の腫大は認めなかった。ダグラス窩腫瘍と両側付属器を摘出した。ダグラス窩腫瘍の病理組織診断はpolypoid endometriosisであり、両側付属器の表層に子宮内膜症を認めた。術後薬物療法は行わず、再燃なく経過している。血性腹水を伴う腫瘍を認めた場合には悪性腫瘍を念頭に精査すべきであるが、本症例のように polypoid endometriosis を含む内膜症性疾患を鑑別に入れる必要がある。

Polypoid endometriosis is a rare type of endometriosis with histological features simulating an endometrial polyp. The imaging findings of polypoid endometriosis appear as a mixed cystic-solid mass and may simulate malignant tumors. We report a case of polypoid endometriosis with massive hemorrhagic ascites. A 47-year-old nulliparous woman was aware of abdominal bloating around menstruation for a year and a half. She was referred to the first hospital with abdominal bloating lasting 2 months. Computed tomography showed large amounts of ascites and a right pneumothorax. Magnetic resonance imaging revealed a 30-mm mass at the cul-de-sac and peritoneal thickening. Bilateral ovarian enlargement was not observed. PET-CT revealed an abnormal accumulation of FDG in the mass at the cul-de-sac and peritoneum. Cytological studies of hemorrhagic ascites were negative. Some investigations of Mycobacterium tuberculosis were negative. We suspected endometriosis but could not exclude malignancy; therefore, we performed exploratory laparotomy. The mass at the cul-de-sac was removed, and salpingo-oophorectomy was performed. Pathological diagnosis revealed polypoid endometriosis of the cul-de-sac mass and endometriosis on the surface of both ovaries. No recurrence occurred over one year of postoperative follow-up. It is necessary to consider endometriosis, including polypoid endometriosis, in a patient with hemorrhagic ascites.

キーワード：polypoid endometriosis, 子宮内膜症, 血性腹水

Key words：polypoid endometriosis, endometriosis, hemorrhagic ascites

緒 言

Polypoid endometriosisは組織学的に子宮内膜ポリープに類似し、嚢胞部と充実部が混在する腫瘤を形成し悪性腫瘍との鑑別を要する稀な子宮内膜症である^{1) 2)}。今

回、大量の血性腹水を伴ったpolypoid endometriosisの1例を経験したので報告する。

症 例

47歳、0妊。

主訴：腹部膨満感。

月経歴：初経11歳，25日周期，月経痛中等度，月経量中等量。

既往歴：46歳時に子宮筋腫の指摘あり（加療歴なし）。

家族歴：父 肺癌，祖父 胃癌，叔父 大腸癌

現病歴：1年半前から月経前後の腹部膨満感を自覚していた。2か月前から持続する腹部膨満感を主訴に近医内科を受診し，経腹超音波検査で腹水貯留を指摘され，当院総合診療科を受診した。腹水穿刺で血性腹水を認めためため婦人科悪性腫瘍の評価目的に当科紹介となった。

初診時理学所見：身長 147 cm，体重 55 kg，BMI 25.5，血圧 119/74 mmHg，脈拍 103回/分，SpO2 98%（room air），体温 37.3℃，右肺で呼吸音減弱，腹部は膨隆，腹囲 95 cm。

血液検査所見（月経2日目）：WBC 6560/ μ L，Hb 9.3 g/dL，Plt 42.9×10^4 / μ L，CEA 2.0 ng/mL（基準値： < 5 ng/mL），CA19-9 < 2 U/mL（基準値： < 37 U/mL），CA125 90 U/mL（基準値： < 35 U/mL），E2 54 pg/mL，LH 3.6 mIU/mL，FSH 6.4 mIU/mL。

内診所見：子宮は下手拳大，可動性良好，硬結触知せ

ず，圧痛なし。

経陰超音波検査所見：子宮の背側に37×23 mm大の腫瘤を認めた。両側卵巣は確認でき，両側付属器の腫大は認めなかった。

子宮頸部細胞診：NILM

子宮内膜細胞診：陰性，子宮内膜組織診：悪性所見なし経過：

胸部レントゲン検査で右気胸を認め（図1），造影CT検査では上腹部までおよぶ大量の腹水貯留と，子宮体部左側に境界不明瞭な腫瘤を認めた（図2）。月経前後に腹部膨満感を認めていた点や気胸を併発している点などから子宮内膜症の可能性を疑ったが，鑑別疾患として腹膜癌や結核性腹膜炎を考え精査を行った。骨盤部造影MRI検査では，子宮左背側にT1強調像で低信号，T2強調像で高信号，拡散強調像で高信号を示す充実性腫瘤を認め，腹膜は全体的に肥厚していた。両側卵巣に異常所見を認めなかった（図3）。悪性腫瘍を否定できなかったためPET-CT検査を施行したところ，子宮左背側の腫瘤に SUVmax 7.7の集積を認め，腹膜に SUVmax 3.3までの集積を伴う結節や肥厚を認めた（図4）。腹水所見は暗褐色の血性腹水で，TP 4.6 g/dL，Alb 2.8 g/dL，LDH 669 U/L，Chol 123 mg/dLであったことから滲出性腹水と考えた。また，腹水中のadenosine deaminase（ADA）40.9 U/L，CA125 3093 U/mLと上昇を認めた。腹水細胞診では異型細胞を認めなかった。これらの検査結果から結核性腹膜炎も鑑別に挙げたが，腹水の抗酸菌塗抹検査は陰性，PCR陰性，T-SPOT陰性であった。さらに，結核性腹膜炎を除外するために胃液，尿，便の抗酸菌塗抹検査，PCR検査および腹水中の抗酸菌の長期培養検査を施行し，それらの結果は陰性であった。結果を確認するまでの2か月間で腹水穿刺を計9回，約12 Lの腹水除去を要した。いずれも腹水細胞診で悪性所見を認めなかった。腹部膨満に伴う食思不振や睡眠困難などの症状は腹水除去により軽減を認めた。初診から



図1 胸部レントゲン検査
右気胸を認める

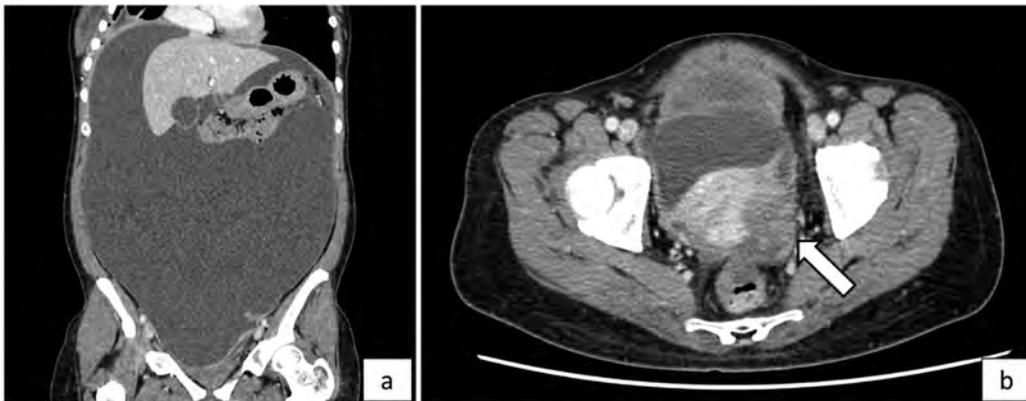


図2 造影CT検査

- a: 上腹部までおよぶ大量の腹水貯留
b: 子宮体部左側に境界不明瞭な腫瘤（矢印）

2か月経過した時点でHb 7.7 g/dL の貧血を認めたためRBCを6単位輸血し、Hb 9.9 g/dL まで改善した。前回のPET-CT検査から2か月経過し、再検したところ子宮左背側腫瘍の集積はSUVmax 3.8 と減弱しており、悪性腫瘍の否定はできないが炎症による集積の可能性が考えられた。気胸に関しては変化を認めなかった。これまでの経過から子宮内膜症を最も疑ったが、腹膜癌などの悪性疾患が完全に否定できないと考え、試験開腹術の方針とした。患者と家族には、経過から子宮内膜症が強く疑われるが悪性疾患の可能性を否定できず、病理組織の確認によって診断を確定させ適切な治療を行う目的で開腹手術による両側付属器切除およびダグラス窩腫瘍の切除を行うこと、永久病理組織診断によって追加治療を行う可能性があることを説明し、試験開腹術に同意を得た。

右気胸に対して胸腔ドレーンを留置し手術を施行した。腹腔内に血性腹水を6000 mL 認めた。小腸は癒着が強固で一塊となっていた。腹膜は著しく肥厚し易出血性であり肝表面や子宮表面からも出血を認めた(図5)。両側付属器は正常大であったが、表面は粗造であった。ダグラス窩に腹膜から発生する黄白色の脆い軟部腫瘍を認め(図6)、腫瘍と子宮背側との癒着は認めなかった。腹腔内所見からも子宮内膜症が最も疑われると判断し、両側付属器摘出術およびダグラス窩腫瘍摘出術を施行した。手術時間は2時間38分、出血量は650 gであった。術後病理組織診断は、ダグラス窩の腫瘍に内膜腺と小型充実性の間質細胞からなる子宮内膜組織を認め、免疫染色でER (+), PgR (+) でありpolypoid endometriosisと診断した(図7)。右卵巣・卵管の表層、

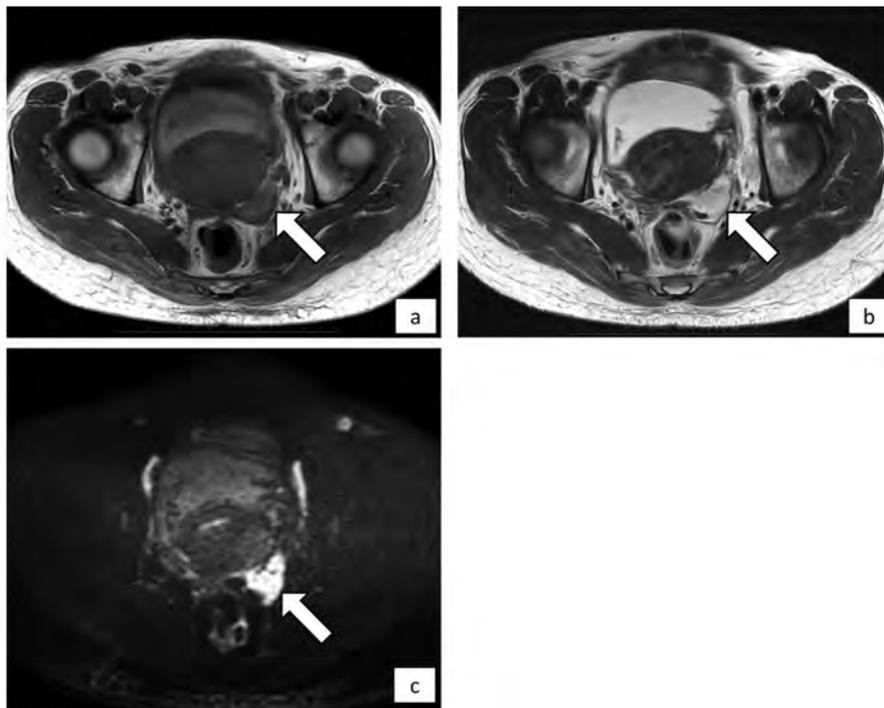


図3 骨盤部造影MRI検査

子宮の左背側の腫瘍

a: T1強調画像で低信号 (矢印)

b: T2強調画像で高信号 (矢印)

c: 拡散強調画像で高信号 (矢印)

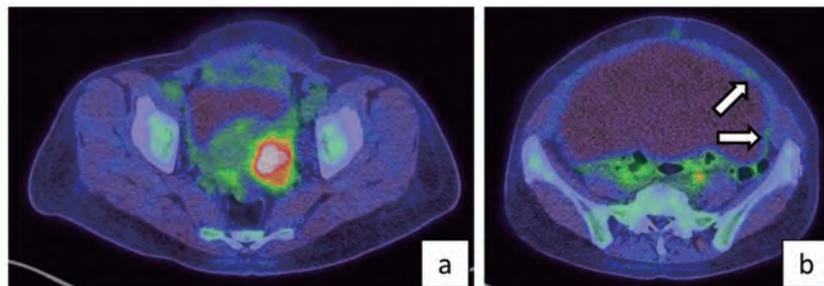


図4 PET-CT検査

a: 子宮の左背側の腫瘍に SUVmax7.7 の集積

b: 腹膜に SUVmax 3.3 までの集積を伴う結節や肥厚 (矢印)

左卵巣の表層に内膜症性病変を認めた。

術後の経過は良好で、術後1か月が経過した時点で血中 CA125 15 U/mL と低下し、E2 < 5 pg/mL であった。術後薬物療法は行わず、経過観察とした。術後1年が経過し、現在までに腹水の再貯留を認めず、気胸も再発していない。

考 察

Polypoid endometriosisとは、組織学的に子宮内膜ポリープに類似し、嚢胞部と充実部が混在する腫瘤を形成し悪性腫瘍との鑑別を要する稀な子宮内膜症であ

る^{1) 2)}。2004年のParker et al.の報告によると発生部位は直腸、S状結腸、卵巣、子宮漿膜の順に多く、その他に子宮頸部、膣粘膜、卵管、尿管、膀胱腹膜、大網、後腹膜などの骨盤内を中心とした様々な部位に発生する。また、好発年齢の平均は52.5歳で子宮内膜症に比べやや高齢であり、タモキシフェン投与やホルモン補充療法との関連が示唆されている¹⁾。Polypoid endometriosisでは腫瘍の充実部のMRI検査所見としてT2強調像で高信号、拡散強調像で中～高信号、ADC値は低下しない傾向にあり、子宮筋層と同程度の強い造影効果を示すなどの報告もあるが、実際には画像所見が多彩で、悪性腫瘍

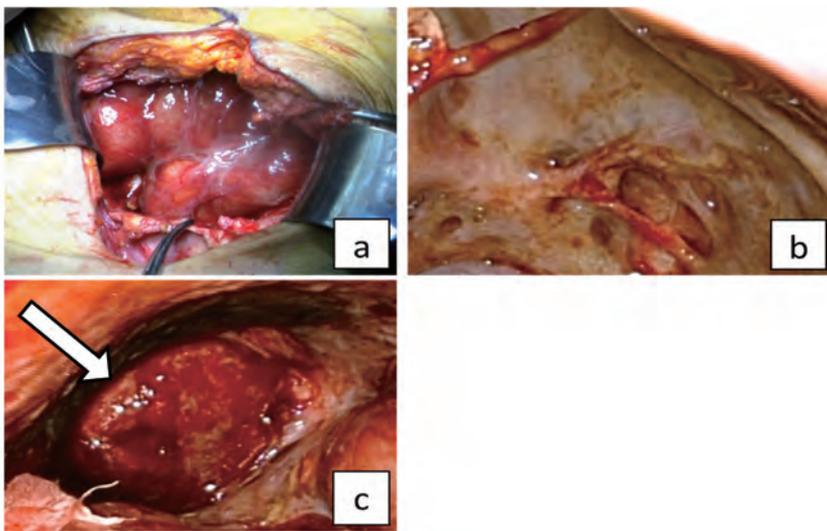


図5 手術所見

- a: 小腸は一塊となり癒着
- b: 左横隔膜の表面は粗造で易出血性
- c: 右上腹部の肝表面 (矢印) から出血あり

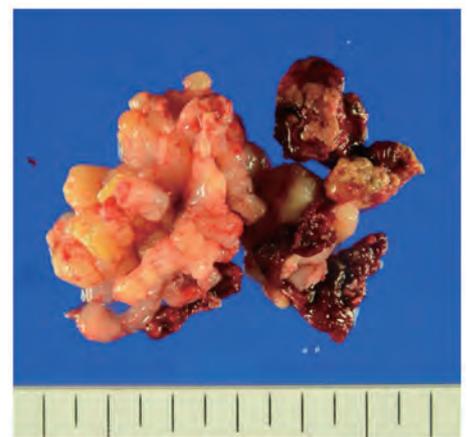


図6 摘出標本
ダグラス窩の軟部腫瘍

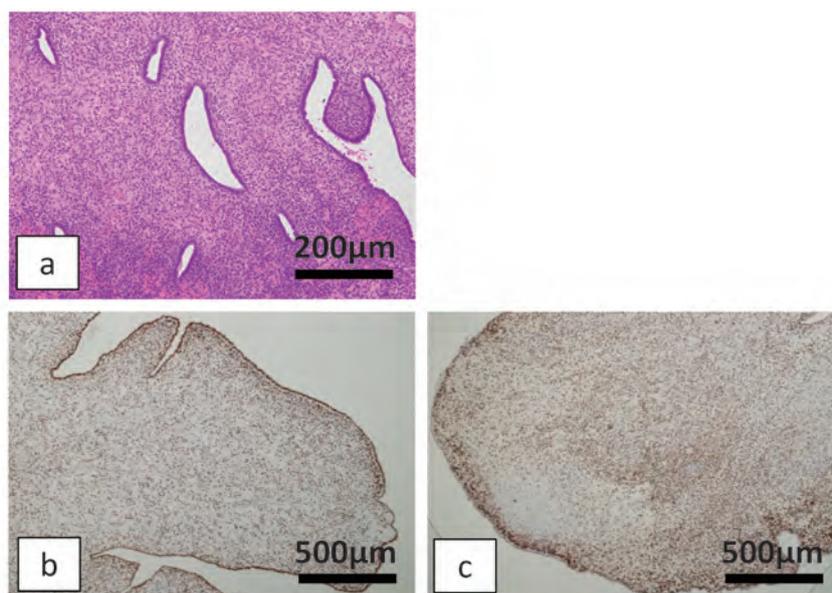


図7 ダグラス窩腫瘍の病理組織

- a: HE染色 (×40) 内膜腺と小型充実性の間質細胞からなる子宮内膜組織
- b: エストロゲン受容体免疫染色 (×100)
- c: プロゲステロン受容体免疫染色 (×100)

との鑑別が困難であることが多い^{3) 4) 5)}。本症例では、月経前後に腹部膨満感を認めていた点や気胸を併発していた点などからダグラス窩腹膜に発生した子宮内膜症の可能性を考えていたが、血性腹水であった点、PET-CT検査でダグラス窩腫瘍に集積を認めた点、および播種を疑う腹膜の肥厚や結節を認めた点から悪性腫瘍との鑑別に苦慮したため試験開腹術を施行し診断した。本症例のように、開腹手術を選択されている症例が多いが、近年では術前にpolypoid endometriosisを疑い腹腔鏡手術で治療し得た症例の報告があり⁶⁾、術前に子宮内膜症を疑った場合には、審査腹腔鏡も選択肢と考える。また、経膈的な生検にて診断した膈polypoid endometriosisにおいてジェノゲスト 2 mg/日の投与で病変の縮小を認めた報告があり⁷⁾、審査腹腔鏡にて診断した後に、ホルモン療法による治療が可能かもしれない。

また、polypoid endometriosisにおいても子宮内膜症と同様に再発の可能性があるため後療法を検討する必要がある。年齢や術前・術中の卵巣の所見、および腫瘍の術中迅速病理診断の結果から卵巣を温存した場合には後療法を要する。本症例では術前には卵巣に特記所見を認めなかったが、年齢や悪性腫瘍が否定できないことを考慮して両側卵巣摘出の方針とした。術後薬物療法は行わず、再発なく経過している。年齢や術前の卵巣の所見から、再発リスクを説明した上で術式を決定することが重要である。

子宮内膜症では稀に大量血性腹水を合併する。大量血性腹水が生じる機序として①骨盤内の内膜症による広汎な癒着が下地にあり、この癒着の自然剥離などによる腹腔内出血、②重症内膜症例では月経血の腹腔内への逆流が多い、③内膜症罹患の卵管や卵巣からの出血、④腹膜の内膜症病変においては子宮内膜のホルモン動態に呼応した内膜変化による出血、また内膜症に随伴する細胞性浸潤がマクロファージなどの作用誘起を来すことが考えられると相馬らは報告している⁸⁾。Polypoid endometriosisにおける血性腹水の産生機序については報告を認めないが同様の機序で生じることが予想される。本症例ではダグラス窩のpolypoid endometriosisを契機として腹壁や腸間膜、大網、肝表面など広範囲に炎症が広がり、また小腸の癒着範囲も広範となっていたため、炎症部位からの出血や癒着部位の自然剥離による出血により大量の血性腹水を生じたと考えられた。

他に血性腹水をきたす疾患として結核性腹膜炎が挙げられる。結核性腹膜炎は極めて稀で、結核患者のうち結核性腹膜炎をきたすのは0.55%程度とされている⁹⁾。本症例では、血性腹水である点、滲出性腹水である点、腹水中のADA上昇を認める点、腹膜に結節や肥厚を認めた点から結核性腹膜炎も鑑別に挙げた。菌の検出による確定診断が原則であるが、各種染色法やPCR法、生検を

行っても確定診断に至らない結核性腹膜炎もある^{9) 10)}。腹水ADA高値が結核性腹膜炎の鑑別診断において有用と考えられており、33 U/Lをカットオフ値とした場合、その感度は100%、特異度は96.6%であるとの報告がある¹¹⁾。早期に診断、治療を要する場合には、腹腔鏡下手術での結核性腹膜炎の診断が有用と報告があり¹²⁾、今後は早期の腹腔鏡手術も選択肢であると考えられる。

結 語

大量の血性腹水を伴うpolypoid endometriosisの1例を経験した。血性腹水を伴う腫瘍を認めた場合には悪性腫瘍を念頭に精査すべきであるが、本症例のようにpolypoid endometriosisを含む内膜症性疾患を鑑別に入れる必要がある。

文 献

- 1) Parker RL, Dadmanesh F, Young RH, Clement PB. Polypoid endometriosis: A clinicopathologic analysis of 24 cases a review of the literature. *Am J Surg Pathol* 2004; 28: 285-297.
- 2) Yamada Y, Miyamoto T, Horiuchi A, Ohya A, Shiozawa T. Polypoid endometriosis of the ovary mimicking ovarian carcinoma dissemination: A case report and literature review. *J Obstet Gynecol Res* 2014; 40: 1426-1430.
- 3) 浦瀬靖代, 北島一宏, 上野嘉子, 前田哲雄, 高橋哲, 蝦名康彦, 原重雄, 杉村和朗. Polypoid endometriosisの2例. *臨床放射線* 2017; 62: 719-723.
- 4) 北井里実. II 卵巣の良性疾患および悪性腫瘍との鑑別診断 1. 充実部と嚢胞部が混在する卵巣腫瘍の鑑別診断 d. Polypoid endometriosis (ポリープ状子宮内膜症) の画像診断. 松村謙臣, 松木充, 木戸晶, 鈴木彩子企画. 産婦人科の実際 Vol.68 No.7 産婦人科診療 decision makingのためのMRI・CT. 金原出版, 2019; 752-756.
- 5) 伊藤史子, 値賀正彦, 斎藤文誉, 高石清美, 本原剛志, 坂口勲, 本田律生, 大場隆, 片瀨秀隆. 多彩な臨床像を示すpolypoid endometriosisの7症例. *エンドメトリオーシス会誌* 2016; 37: 169-173.
- 6) 伊藤真友子, 河村京子, 西澤春紀, 河合智之, 安江朗, 西尾永司, 塚田和彦, 廣田穰, 藤井多久磨. 術前にPolypoid endometriosisが疑われ、腹腔鏡手術により治療し得た1例. *日産婦内視鏡学会* 2014; 29: 489-493.
- 7) 古村絢子, 蛭田健夫, 佐川義英, 鮫島大輝, 寺田光二郎, 中村泰昭, 落合尚美, 中川圭介, 中江華子, 五十嵐敏雄, 梁善光. 膈polypoid子宮内膜症に対す

るジエノゲストの投与経験から分かったこと. エンドメトリオーシス会誌 2014; 35: 183-186.

- 8) 相馬廣明, 本間智一. 骨盤子宮内膜症に合併する大量血性腹水. 日本産婦人科・新生児血液学会誌 1994; 4 (1): 1-10.
- 9) 田中義人. 最近の肺外結核について 結核性腹膜炎. 結核1985; 60: 96-98.
- 10) 頼冠名, 栗本悦子, 草野展周, 小出典男, 西井研治. 腹水中のADA高値が診断に寄与した若年女性結核性腹膜炎の1例. 感染症学雑誌 2004; 78: 10: 916-922.
- 11) Dwevedi M, Misra SP, Misra V, Kumar R. Value of Adenosine Deaminase Estimation in the Diagnosis of Tuberculous Ascites. Am J Gastroenterol 1990; 85: 1123-1125.
- 12) 田野翔, 宇野枢, 吉原雅人, 眞山学徳, 鵜飼真由, 竹田健彦, 山田拓馬, 伊吉祥平, 安藤万恵, 上野琢史, 清水一紀, 中尾一貴, 近藤真哉, 古株哲也, 原田統子, 岸上靖幸, 小口秀紀. 腹腔鏡下手術が結核性腹膜炎の診断に有用であった1例—結核性腹膜炎の診断と感染対策—. 日産婦内視鏡学会 2016; 32: 244-249.

【連絡先】

榎園 優香

独立行政法人労働者健康安全機構中国労災病院
〒737-0193 広島県呉市広多賀谷1丁目5番1号

電話: 0823-72-7171 FAX: 0823-74-0371

E-mail: yuka_m1006@yahoo.co.jp