

腹腔鏡手術所見により診断したintramural pregnancyの一例

池田 隆史・栗原 秀一・平山 亜美・田淵 景子・西野 由衣・駒水 達哉
中野 志帆・瀬村 肇子・高杉 篤志・信田 絢美・梶原 涼子・本田 直利

松山赤十字病院 産婦人科

Intramural pregnancy diagnosed using exploratory laparoscopy: A case report

Takashi Ikeda · Syuichi Kurihara · Ami Hirayama · Keiko Tabuchi · Yui Nishino · Tatsuya Komamizu
Shiho Nakano · Hatsuko Semura · Atsushi Takasugi · Ayami Shinoda · Ryoko Kajiwara · Naotoshi Honda

Department of Obstetrics and Gynecology, Matsuyama Red Cross Hospital

intramural pregnancyとは、異所性妊娠のうちの稀な一亜型であり、診断の要件は「筋層が妊娠成分を囲い、子宮腔・卵管から離れているもの」とされる。患者背景として、子宮手術や子宮内操作の既往を有することが多い。画像検査による術前の正診率は半数程度とされており、診断は困難である。今回、腹腔鏡手術所見により診断した既往帝王切開術後のintramural pregnancyを経験したので報告する。症例は44歳、2妊1産。帝王切開1回。続発性無月経、下腹部痛、妊娠反応陽性のため当科へ紹介された。経膈超音波検査、骨盤部MRI検査で子宮右前方に単純嚢胞を認めた。血液検査で血清hCGは27,284 mIU/mLであった。右卵管間質部妊娠を疑い腹腔鏡手術を施行したところ、異所性妊娠部位は子宮右前方の筋層内への妊娠であり、intramural pregnancyであった。再度の説明が必要と判断し、診断のみで終了した。methotrexate (MTX)投与を開始したが、早期の治療終了を希望され、腹腔鏡下单純子宮全摘出術を施行した。異所性妊娠の術前診断において、画像での病変の局在が典型的でない場合は、intramural pregnancyも鑑別しておくべきである。

Intramural pregnancy, a rare subtype of ectopic pregnancy, can be diagnosed only if the myometrium surrounds the conceptus and is separated from the uterine cavity and oviducts. Patients often have a history of uterine or intrauterine surgery. Diagnosis is challenging, with a preoperative diagnostic accuracy rate of approximately 50%. We report a case of intramural pregnancy diagnosed using exploratory laparoscopy in a 44-year-old woman (gravida 2, para 1) with a history of cesarean delivery. The patient presented for evaluation of abdominal pain and amenorrhea and had a positive pregnancy test result. Transvaginal ultrasonography and magnetic resonance imaging showed a simple right-sided cyst, anterior to the uterus. The serum human chorionic gonadotropin level was elevated to 27,284 mIU/mL. We initially diagnosed the patient with a right tubal interstitial pregnancy and performed exploratory laparoscopy, which unexpectedly revealed an intramural pregnancy, and she was administered methotrexate; however, we finally performed total laparoscopic hysterectomy. Intramural pregnancy should be considered in the differential diagnosis in women with an unclear site of pregnancy.

キーワード：異所性妊娠, 既往帝王切開, 腹腔鏡手術

Key words: intramural pregnancy, intramural ectopic pregnancy

緒 言

intramural pregnancyとは、異所性妊娠のうち稀な一亜型であり、診断の要件は「筋層が妊娠成分を囲い、子宮腔・卵管から離れているもの」とされる^{1,2)}。患者背景として、子宮手術や子宮内操作の既往を有することが多い。今回、既往帝王切開術後のintramural pregnancyの一例を経験したので報告する。

症 例

44歳, 2妊1産 帝王切開1回

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

病歴：生来月経は整であった。最終月経開始はX月ごろ、日付は不詳であった。X+2月頃から断続的な下腹部痛が出現し、近医消化器内科で腹部単純CT検査を受け、骨盤内に異常はなかった。その後市販の妊娠検査薬が陽性となったため前医を受診した。子宮内に胎嚢を認めず、血清ヒト絨毛ゴナドトロピン (hCG) は19,240 mIU/mLであった。正常妊娠が否定的なため当科を紹介受診した。初診時、膈鏡診で血性帯下を認めなかった。経膈超音波断層法で子宮内膜は高輝度で、肥厚していた。子宮右前方に14 mmの単房性嚢胞を認めた。嚢胞の内部は無エコーで卵黄嚢や胎児心拍を認めな

かった(図1)。血液検査で血清hCGは27,284 mIU/mLと上昇していた。胞状奇胎の可能性を考慮し、子宮内容除去術を施行したが、絨毛組織を認めず、血清hCGの低下はなかった。骨盤部単純MRI検査では、子宮右前方の嚢胞は17 mm大のT2高信号を呈する円形嚢胞性病変として認められた。嚢胞は子宮との連続性があり、嚢胞と子宮内膜や帝王切開癒痕部との連続性はなかった(図2)。右卵管間質部妊娠を疑い、腹腔鏡手術(初回)を施行する方針とした。術前に患者へは、腹腔鏡手術所見に基づき右卵管と右卵管間質部の楔状切除を施行する可能性があることを説明した。

初回の腹腔鏡手術所見(図3)：

腹腔内には淡血性腹水を少量認めた。子宮体部前壁の一部に腹腔側へなだらかに隆起した部位があり、同部位は内部に液体の貯留が透見され、菲薄化した筋層と子宮漿膜に覆われた胎嚢と考えられた。さらに、同部位尾側の半分は帝王切開術後変化により挙上したと思われる膀胱子宮窩腹膜により覆われていた。左右付属器、ダグラス窩、その他上腹部を含め観察し、異常を認めなかつ

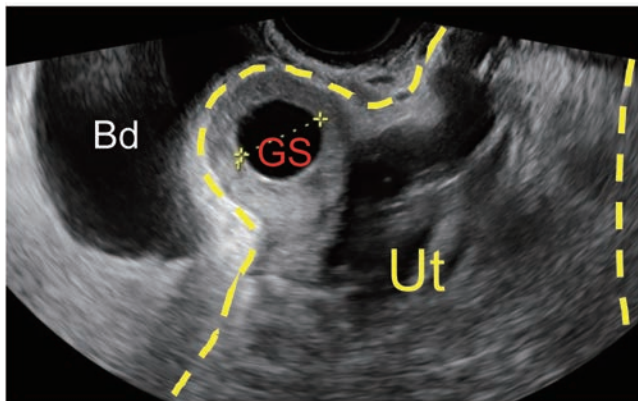


図1 初診時の経膣超音波断層法所見
子宮前壁周囲の矢状断面。GS：胎嚢，Ut：子宮，Bd：膀胱。
子宮右前方に内部無エコーな嚢胞(GS)を認めた。

た。腹腔鏡手術所見から、intramural pregnancyと診断した。妊孕性温存の希望はなく、病変の外科的治療のためには子宮全摘出術が妥当と考えられたが、多量出血のリスクがあることに加え、術前の患者本人への説明では子宮摘出まで想定しておらず、治療方針を再度共有する必要があった。診断のみで手術を終了した。

治療方針として手術療法が第一選択であることを説明し、子宮摘出術を提案したが、患者の強い希望によりmethotrexate (MTX)による薬物療法(保険適応外)を試みる方針とした。MTX全身投与療法(single-dose protocol)として初回の腹腔鏡手術施行翌日にMTX 50 mg/m²を筋肉内注射した。血清hCG値は投与4日後の26,776 mIU/mLと比較して投与7日後には20,089 mIU/mLと約25%低下し、以後も血清hCG値の低下は順調であった(図4)。しかし、早期の根治的治療を希望され、手術療法(腹腔鏡下子宮全摘出術)を行う方針とした。

腹腔鏡下单純子宮全摘出術所見(図5)：

腹腔内の所見は初回の腹腔鏡手術時と同様であった。過去の帝王切開術により吊り上がったと思われる膀胱子宮下窩腹膜を子宮体下部より尾側へ剥離した際、胎嚢周囲から強出血を認めた。また摘出の過程で胎嚢が露出した。術中出血量は250 gであった。術後経過に異常を認めず、術後1ヶ月後に血清hCGは検出感度未満となった。

病理学的所見：

肉眼的には、内子宮口の高さに帝王切開術の癒痕を認め、それよりも約1 cm子宮底側の体部前壁に胎嚢を認めた。断面では病変の半分が漿膜側へ半球状に突出しており、肉眼的には筋層内の病変なのか漿膜下の病変なのか判別困難であった。なお胎嚢は帝王切開癒痕や子宮内腔から離れていた(図6)。組織学的には、半球

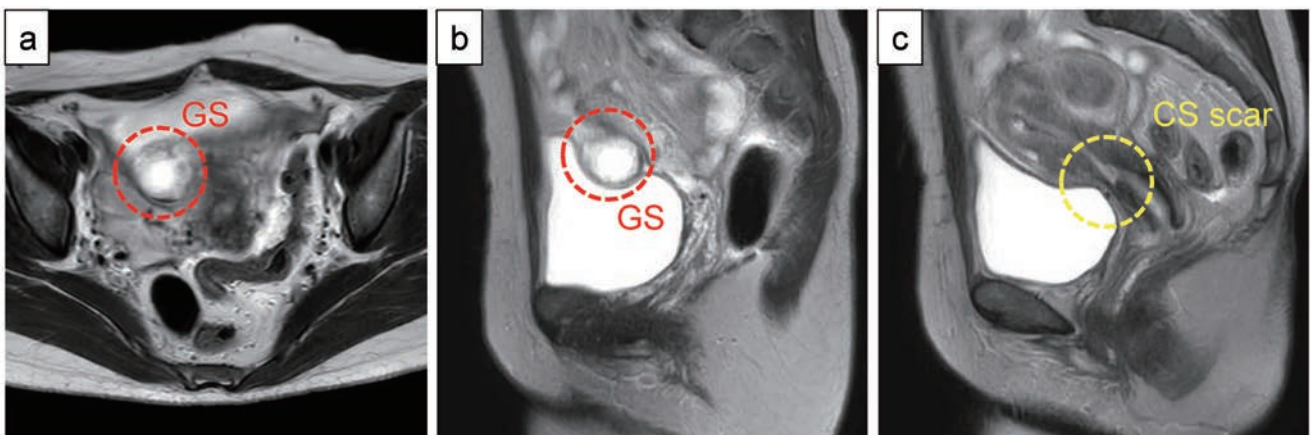


図2 術前のMRI T2強調画像所見

- a：水平断 胎嚢(GS)を子宮右前方に認めた。
b：矢状断(胎嚢(GS)を含む断面) 胎嚢は子宮内膜から離れていた。
c：矢状断(帝王切開癒痕(CS scar)を含む断面) 図2 bと比較して胎嚢は帝王切開癒痕とは離れていた。

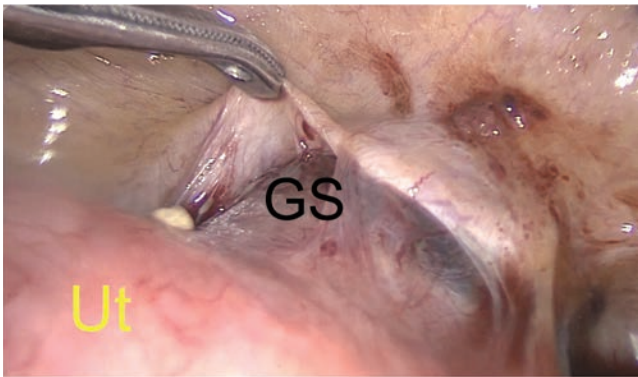


図3 初回の腹腔鏡手術所見

子宮体下部前面を観察。Ut：子宮，GS：胎囊。
胎囊（GS）は子宮（Ut）の体下部右前面に位置し、挙上した膀胱子宮窩腹膜に覆われていた。

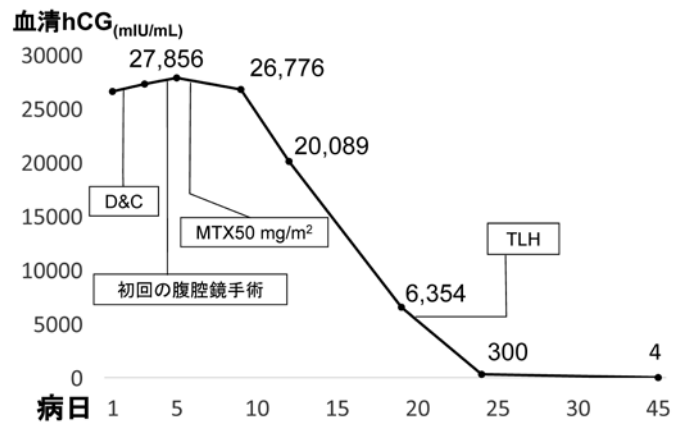


図4 血清hCGの経過

D&C：子宮内容除去術，MTX：methotrexate，TLH：腹腔鏡下単純子宮全摘出術。
血清hCGはMTX投与後に低下し，子宮摘出後にさらに低下し5 mIU/mL未滿となった。

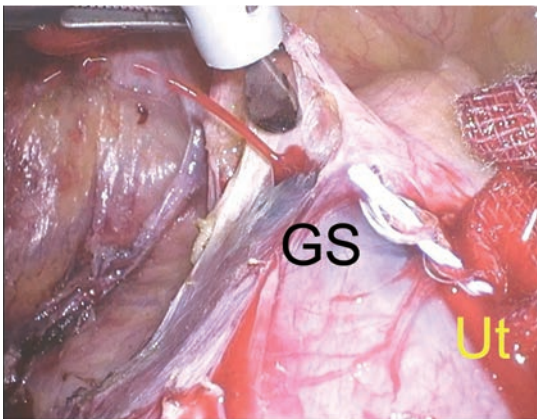


図5 腹腔鏡下単純子宮全摘出術所見

子宮体下部前面を観察。Ut：子宮，GS：胎囊。
膀胱剥離時に胎囊表面から強出血を認めた。

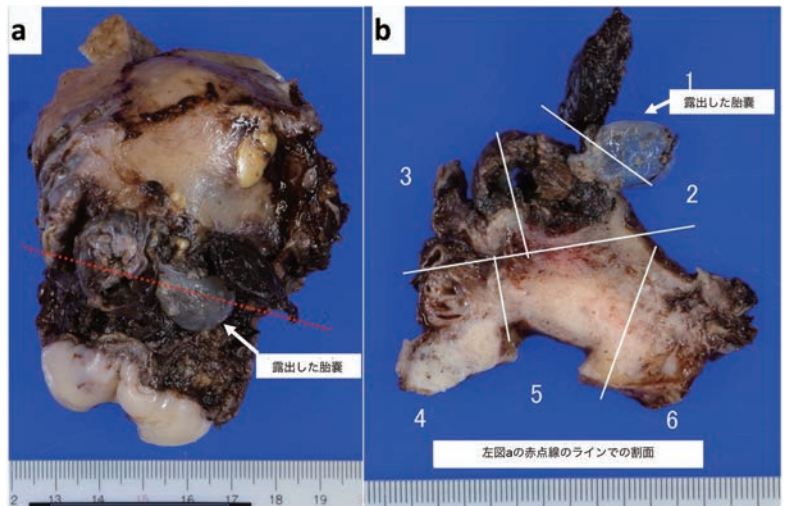


図6 摘出した子宮の肉眼像（ホルマリン固定後）

a：後壁で切開した子宮の漿膜側を示している。子宮体前壁に術中操作により露出した胎囊がみられる。b：子宮の断面（図6 aの点線で割を入れた）を示す。子宮筋層の最外層に着床部位を認める。

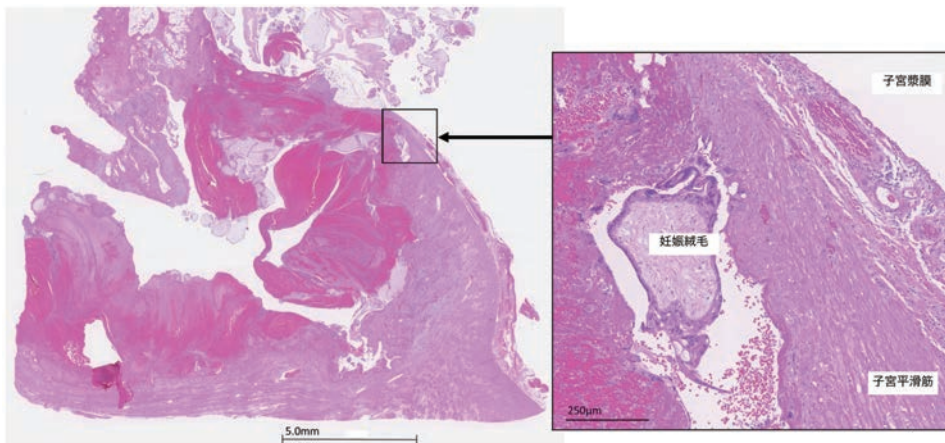


図7 着床部位（図6での切り出し番号No.2）のルーペ像

嚢胞状となっている着床部位には漿膜側にも子宮平滑筋束がみられる（拡大図）ことから，筋層内に着床したと考えられる。HE染色。

状に突出した部位を覆うように、子宮体部筋層から連続する平滑筋束を認め、筋層内に着床したものと思われた(図7)。以上より組織学的にもintramural pregnancyと診断した。

考 案

intramural pregnancyは異所性妊娠全体のうち1%未満と稀である³⁾。患者背景として、子宮手術や子宮内操作の既往を有することが多い。Chen et al.の報告によると、intramural pregnancy53例の84%に子宮手術歴があり、さらにそのうち62%は子宮内膜搔爬、22%は帝王切開の既往があったとされる⁴⁾。intramural pregnancyの発生メカニズムは未だに解明されていないが、いくつかの仮説が提唱されており、子宮内膜の損傷の間隙に受精卵が迷入する説²⁾、静脈を経由して子宮筋層内へ侵入する説²⁾、子宮腺筋症を経由する説⁵⁾、子宮内腔に迷入可能な憩室が存在するとする説⁵⁾、および受精卵が腹腔

内を遊走し漿膜下に着床する説⁶⁾などが提唱されている。本症例においては帝王切開術の既往があり、それが発症に関与した可能性が考えられる。

intramural pregnancyの画像診断での典型的な特徴は、①胎嚢が完全に筋層に囲まれていること、②胎嚢が子宮内腔にも卵管にも交通していないこと、③時として胎芽の心拍を認めうること、と提唱されているが実際の術前の正診率は高くなく、超音波断層法やMRI検査により術前診断されるのは半分程度である⁴⁾。他の異所性妊娠、例えば卵管妊娠、間質部妊娠と誤診されることが多い⁷⁾。実際に本症例では、上記のような典型的な超音波所見ではなく、卵管間質部妊娠を疑った。本症例はintramural pregnancyのリスク因子として帝王切開術の既往を有しており、術前に本疾患を想定していれば、初回の腹腔鏡手術施行前の時点で、子宮摘出術に関してあらかじめ術前に説明ができ、一期的な手術を行うことで患者の負担を軽減できた可能性がある。Liu et al.は、intramural pregnancyと他の異所性妊娠の鑑別でエコーでの診断の有用性について報告しており、カラードップラー法で嚢胞周囲の筋層に血流豊富な血管が見られると述べている⁸⁾。本症例でも初回の腹腔鏡手術後にエコーで確認すると、同様の所見が見られた(図8)。

intramural pregnancyの治療法は、妊孕性温存希望の有無を踏まえ、個々の症例ごとに検討されている。過去の報告では、他の異所性妊娠の治療法に準じて手術療法、薬物療法、子宮動脈塞栓術、待機的管理などが選択されている⁷⁾。異所性妊娠のMTX適応症例については、わが国の産科ガイドライン2020で、①明らかな痛みのないこと、②未破裂腫瘤35 mm以下、③胎児心拍な

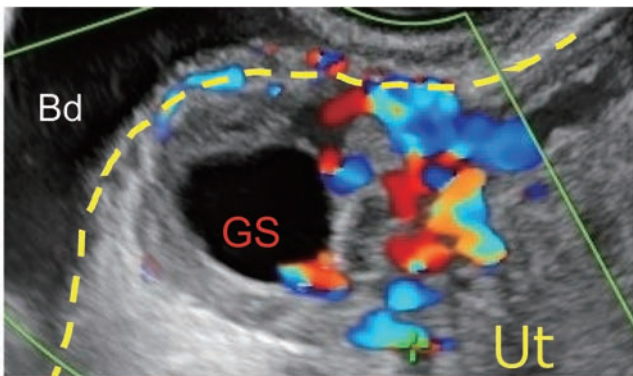


図8 初回の腹腔鏡手術後の経腔超音波断層法所見
子宮前壁周囲の矢状断面。GS：胎嚢、Bd：膀胱、Ut：子宮。
カラードップラー法で胎嚢の周囲の子宮筋層に豊富な血流を認めた。

表1 帝王切開術の既往のあるintramural pregnancy症例

年齢	G, P	既往	妊娠週数	胎嚢の局在	診断法	治療	著者
44	G2P1	1xCS	8-10週	体下部右前壁	腹腔鏡	腹腔鏡下子宮全摘	(自験例)
38	G2P1	1xCS	10週	左後壁	-	-	Chen et al. ⁴⁾
25	G4P1	1xCS, 1xAA	6週	後壁	腹腔鏡	開腹部分切除	Kirk et al. ⁷⁾
21	G2P1	1xCS	12週	体下部前壁	開腹	開腹子宮全摘	東山ら ¹⁰⁾
37	G4P2	1xCS	5週	右後壁	超音波	開腹子宮全摘	Lu et al. ¹¹⁾
30	G4P1	1xCS	13週	体下部前壁	MRI	MTX局所投与	Ko et al. ¹²⁾
37	G4P3	3xCS	10週	帝切創部近傍	超音波	開腹部分切除	Al-Nazer et al. ¹³⁾
38	G3P1	1xCS	8週	底部	超音波	腹腔鏡下部分切除	Nabeshima et al. ¹⁴⁾
33	G4P1	1xCS	5週	後壁	超音波	嚢腫吸引	Memtsa et al. ¹⁵⁾
30	G1P1	1xCS	10週	後壁	超音波	MTX局所投与	Zhang et al. ¹⁶⁾
24	G2P1	1xCS	8週	左卵管近傍	超音波	開腹部分切除	Nees et al. ¹⁷⁾
41	G5P2	1xCS, 3xAA	8週	右角部近傍	腹腔鏡	腹腔鏡下部分切除	Shen et al. ¹⁸⁾
36	G3P1	1xCS, 2xAA	4週	右側	腹腔鏡	腹腔鏡下部分切除	Shen et al. ¹⁸⁾
39	G2P1	1xCS, 1xD&C	7週	右角部近傍	腹腔鏡	腹腔鏡下部分切除	Shen et al. ¹⁸⁾

※G:妊娠回数、P: 出産回数、CS: 帝王切開術、AA: 人工妊娠中絶、D&C: 子宮内容除去術

し、④hCG 5,000 mIU/mL未満、⑤子宮内妊娠のないこと、⑥投与後フォローアップ可能なこと、が条件とされている⁹⁾。これらの基準に鑑みると、本症例においてはMTXを用いた薬物療法は積極的な適応となるとは言い難かったが、患者の希望、および胎嚢周囲の血流が豊富で術中出血リスクが高いと考えられたことにより、急変時対応の体制を整えた上でMTX投与を先行した。最終的に子宮摘出となったが、MTX投与後の血清hCGの推移からは、ある程度奏功したとも考えられた。

本症例のintramural pregnancyのリスク因子として、帝王切開術の既往があげられる。帝王切開術の既往に着目し、これまでに報告された帝王切開術の既往のあるintramural pregnancy症例の文献レビューを行った(表1)。興味深いことに、本症例の胎嚢の局在は子宮体下部右前壁であり帝王切開創部に比較的近いが、他方で過去の報告では胎嚢が底部や後壁に位置するものも散見される。異所性妊娠の妊娠部位を検索する場合において、帝王切開術等の既往があるからといって検索範囲を特定の部位に限定することは、胎嚢の見落としにつながるかもしれない。超音波断層法検査、MRI検査、時に腹腔鏡手術といった腹腔内全体の検索は重要であると思われる。

腹腔鏡手術所見により確定診断したintramural pregnancyの一例を経験した。異所性妊娠と考えられるが画像での病変の局在が典型的ではない場合はintramural pregnancyも鑑別におくべきである。

文 献

- 1) Fait G, Goyert G, Sundareson A, Pickens A. Intramural pregnancy with fetal survival: case history and discussion of etiologic factors. *Obstet Gynecol* 1987; 70: 472-474.
- 2) McGowan L. Intramural pregnancy. *JAMA* 1965; 192: 637-638.
- 3) Ong C, Su LL, Chia D, Choolani M, Biswas A. Sonographic diagnosis and successful medical management of an intramural pregnancy. *J Clin Ultrasound* 2010; 38: 320-324.
- 4) Chen X, Gao L, Yu H, Liu M, Kong S, Li S. Intramural Ectopic Pregnancy: Clinical characteristics, risk factors for uterine rupture and hysterectomy. *Front Med* 2021; 8 769627: 1-9.
- 5) Hamilton CJ, Legarth J, Jaroudi KA. Intramural pregnancy after in vitro fertilization and embryo transfer. *Fertile Steril* 1992; 57(1): 215-217.
- 6) Achmatowicz L, Warsaw MD. Ectopic pregnancy inside the uterine wall in a fibromatous uterus. *Lancet* 1952; 2: 63-64.
- 7) Kirk E, McDonald K, Rees J, Govind A. Intramural ectopic pregnancy: a case and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2013; 168: 129-133.
- 8) Liu N, Han XS, Guo XJ, Sun LT, Kong XC. Ultrasound diagnosis of intramural pregnancy. *J Obstet Gynaecol Res* 2017; 43(6): 1071-1075.
- 9) 日本産婦人科学会, 日本産婦人科医会編. 産婦人科診療ガイドライン 産科編. 東京: 杏林舎, 2020; 115-118.
- 10) 東山俊祐, 後山尚久, 小笠原尚子, 植木實, 伊藤親昭. 帝王切開創に着床した子宮筋層内妊娠の1例. *産婦の進歩* 2000; 52(1): 14-18.
- 11) Lu HF, Sheu BC, Shih JC, Chang YL, Torng PL, Huang SC. Intramural ectopic pregnancy. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1997; 76: e886889.
- 12) Ko HS, Lee Y, Lee HJ, Park IY, Chung DY, Kim SP, Park TC, Shin JC. Sonographic and MR findings in 2 cases of intramural pregnancy treated conservatively. *J Clin Ultrasound* 2006; 34(7): 356-360.
- 13) Al-Nazer A, Omar L, Wahba M, Abbas T, Abdulkarim M. Ectopic intramural pregnancy developing at the site of a cesarean section scar: a case report. *Cases J* 2009; 2: e9404.
- 14) Nabeshima H, Nishimoto M, Utsunomiya H, Arai M, Ugajin T, Terada Y, Yaegashi N. Total laparoscopic conservative surgery for an intramural ectopic pregnancy. *Diagn Ther Endosc* 2010; e504062.
- 15) Memtsa M, Jamil A, Sebire N, Jauniaux E, Jurkovic D. Diagnosis and management of intramural ectopic pregnancy. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2013; 42(3): 359-362.
- 16) Zhang Q, Xing X, Liu S, Xie X, Liu X, Qian F, Liu Y. Intramural ectopic pregnancy following pelvic adhesion: case report. *Arch Gynecol Obstet* 2019; 300: 1507-1520.
- 17) Nees J, Faigle-Krehl G, Brucker J, Leucht D, Platzer LK, Flechtenmacher C, Sohn C, Wallwiener M. Intramural pregnancy: A case report. *Case Rep Womens Health* 2020; 27: e00215.
- 18) Shen Z, Liu C, Zhao L, Xu L, Peng B, Chen Z, Li X, Zhou J. Minimally-invasive management of intramural ectopic pregnancy: an eight-case series and literature review. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2020; 253: 180-186.

【連絡先】

池田 隆史

松山赤十字病院産婦人科

〒790-8524 愛媛県松山市文京町1

電話：089-924-1111 FAX：089-922-6892

E-mail：t.ike.da290@gmail.com