

卵巣子宮内膜症性嚢胞を伴う非交通性副角子宮に対し腹腔鏡下副角子宮摘出術 および片側付属器切除術を施行した一例

田中奈緒子・久保 倫子・徳本 佑奈・川口優里香・坂井 裕樹・横畑 理美
築澤 良亮・森川 恵司・植田麻衣子・谷 和祐・関野 和
依光 正枝・上野 尚子・石田 理・児玉 順一

広島市立広島市民病院 産科・婦人科

Laparoscopic management of an ovarian endometriotic cyst in a unicornuate uterus with non-communicating rudimentary horn: A case report

Naoko Tanaka・Rinko Kubo・Yuna Tokumoto・Yurika Kawaguchi・Yuki Sakai
Satomi Yokohata・Yoshiaki Tsukizawa・Keiji Morikawa・Maiko Ueda・Kazumasa Tani
Madoka Sekino・Masae Yorimitsu・Naoko Ueno・Makoto Ishida・Junichi Kodama

Department of Obstetrics and Gynecology, Hiroshima City Hiroshima Citizens Hospital

非交通性副角子宮を有する単角子宮は、先天性子宮形態異常の中でも稀な疾患であり、子宮内膜症や子宮留血腫を合併し、月経困難症の原因となる。今回、卵巣子宮内膜症性嚢胞を伴う非交通性副角子宮に対し腹腔鏡下副角子宮摘出術および片側付属器摘出術を施行した一例を経験したので報告する。症例は15歳、未経産。初経10歳、初経後早期より月経困難症を認めていた。生後早期に鎖肛手術、3歳時に膀胱尿管逆流防止術の既往がある。今回、月経時に右下腹部痛を認め、当院救急外来を受診し、腹部CT検査で右卵巣嚢腫および骨盤内の異常構造物を認め、当科紹介となった。診察および画像検査から、非交通性の右副角子宮を伴う左単角子宮、右副角子宮留血腫、右卵巣子宮内膜症性嚢胞、右腎尿管欠損が疑われた。月経困難症の改善や、子宮内膜症による将来の不妊や妊娠合併症の予防目的に、腹腔鏡下手術を行う方針とした。術前に偽閉経療法および黄体ホルモン療法を行ったが、頭痛・嘔気等の副作用を認め中止となり、治療開始後5カ月で腹腔鏡下手術を施行した。手術所見では、単角子宮と副角子宮は離れて位置しており、連続性を認めなかった。右付属器領域の高度内膜症性癒着のため右卵巣温存は困難と判断し、副角子宮摘出術および右付属器切除術を施行した。術後経過は良好であり、副作用のため薬物治療は行わず、現在定期受診を行っている。若年女性の月経困難症の原因として、本症例のような先天性子宮形態異常は稀ではあるが、正確な診断や適切な治療が求められる。近年、非交通性副角子宮に対する腹腔鏡下手術の報告が増えつつあり、月経困難症の改善や妊娠合併症の予防に有効な治療法と考えられた。

Unicornuate uterus with non-communicating rudimentary is an extremely rare congenital uterine anomaly and associated with endometriosis and hematometra, which may cause dysmenorrhea. We report a case of laparoscopic management of an ovarian endometriotic cyst in a unicornuate uterus with a non-communicating rudimentary horn. The patient was a 15-year-old female who presented with lower abdominal pain. She had a history of anal fistula surgery and vesicoureteral reflux surgery during childhood. Based on examination and imaging studies, a unicornuate uterus with a non-communicating rudimentary horn, hematometra of the rudimentary horn, right ovarian endometriotic cyst, and right renal tubal defect were suspected. She underwent laparoscopic surgery in which rudimentary horn resection and right adnexectomy was performed to improve dysmenorrhea and prevent future infertility and pregnancy complications due to endometriosis. The postoperative course of the patient was good, and she is currently undergoing regular follow-up. Although congenital uterine anomalies are a rare cause of dysmenorrhea in young women, accurate diagnosis and appropriate treatment are required. Recently, increasing reports have been published on laparoscopic surgery for a unicornuate uterus with a rudimentary horn, which is considered to be an effective treatment for dysmenorrhea and prevention of pregnancy complications.

キーワード：非交通性副角子宮を有する単角子宮、月経困難症、卵巣子宮内膜症性嚢胞、腹腔鏡下手術
Key words：unicornuate uterus with non-communicating rudimentary, dysmenorrhea, endometriotic cyst, laparoscopic surgery

緒 言

先天性子宮形態異常は、胎生期の左右のミューラー管の癒合不全や形成不全により発生する。非交通性副角子宮を有する単角子宮は、先天性子宮形態異常の中でも稀な疾患であり、子宮留血腫や子宮内膜症を合併し、月経困難症の原因となる¹⁾。今回、月経困難症を主訴に卵巣子宮内膜症性嚢胞を伴う非交通性副角子宮と診断し、腹腔鏡下副角子宮摘出術および片側付属器摘出術を施行した一例を経験したので報告する。

症 例

15歳，0妊0産，生後早期に鎖肛手術，3歳時に膀胱尿管逆流防止術の既往があり，当院小児外科で定期経過観察されていた。家族歴に特記事項はない。初経10歳，月経周期30日・整，持続5日間，初経後早期より月経困難症を認めていたが，対症療法のみで，婦人科受診をしていなかった。今回，月経2日目に右下腹部痛を認め，当院救急外来を受診した。造影CT検査（図1）で，左側に偏位した子宮とは別に，骨盤内右側に水平断で子宮と同輝度のリング状の構造物30mm大および隣接する低吸収の嚢胞性腫瘍57mm大を認めた。また軽度腎盂拡大

を伴う左腎臓を認めたが，右腎臓は欠損していた。下腹部痛の原因として婦人科疾患の可能性が疑われ，当科紹介となった。身長158.0cm，体重47.0kg，外表所見は年齢相当の発育で，陰毛TannerⅢ度であった。腔鏡診では，外子宮口1つで左側に偏位し，腔管も1つで腔中隔は認めなかった。経腹超音波検査（図2）では，左側子宮は腔と連続しており，骨盤内右側の嚢胞性腫瘍の頭側に子宮と同じ低エコー像を示す構造物を認めた。骨盤MRI検査（図3）では，骨盤内右側の構造物は副角子宮であることが疑われた。副角子宮は対側子宮や腔との連続性を認めず，対側子宮と離れて位置し下方は盲端に終わり子宮留血腫を伴っていた。骨盤内右側の嚢胞性腫瘍は右卵巣子宮内膜症性嚢胞が疑われた。左卵巣は正常大であった。以上の所見より，非交通性の右副角子宮を伴う左単角子宮，右副角子宮留血腫，右卵巣子宮内膜症性嚢胞，右腎尿管欠損と診断した。

副角子宮の子宮留血腫や子宮内膜症による月経困難症の改善や今後の不妊症・妊娠合併症の予防目的に手術を行う方針とした。術前に薬物治療としてレルゴリクス40mg/day，続いてジエノゲスト2mg/dayを行ったが，どちらも頭痛・嘔気等の副作用を認め中止となり，薬物治療開始後5カ月で腹腔鏡下手術を行った。開脚

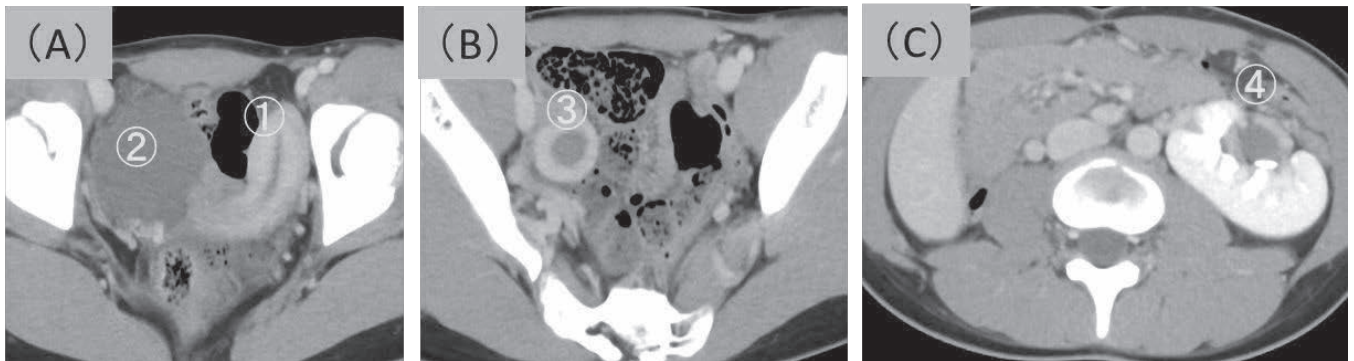


図1 造影CT検査 水平断

- (A) 左側に偏位した子宮 (1) と骨盤内右側に低吸収の嚢胞性腫瘍 (2) を認めた。
 (B) 嚢胞性腫瘍に隣接する子宮と同輝度のリング状構造物 (3) を認めた。
 (C) 軽度腎盂拡大を伴う左腎臓 (4) を認めたが，右腎臓は欠損していた。

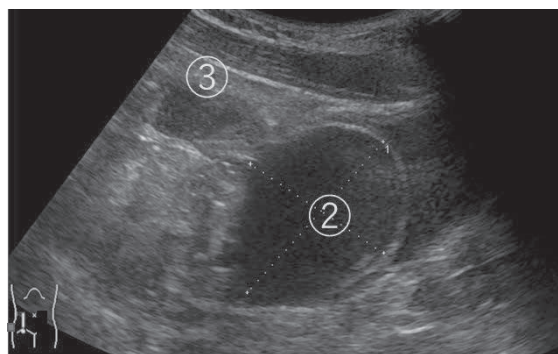


図2 経腹超音波検査 矢状断

骨盤内右側の嚢胞性腫瘍 (2) の頭側に子宮と同じ低エコー像を示す構造物 (3) を認めた。

位・全身麻酔下にて臍部・右下・左上・左下の4箇所
にパラレルポート配置でポートを作成し、腹腔内を
観察した。骨盤の左側寄りに小鶏卵大の単角子宮と
左卵巣正常大を確認した。単角子宮と離れて骨盤
右側壁の骨盤漏斗靱帯の起始部付近に副角子宮
および右嚢胞性腫瘍6cm大を認めた。副角子宮と
右嚢胞性腫瘍には、内膜症による高度の癒着
(r-ASRM STAGEIV)を認め、上行結腸も一部癒着
していたため鈍的剥離を行い、右嚢胞性腫瘍

は右卵巣由来であると考えられた。途中腫瘍が破綻し、
チョコレート色の内容液を認め、卵巣子宮内膜症性嚢
胞が疑われた。右卵巣由来と考えた嚢胞性腫瘍は、
高度な内膜症性癒着により副角子宮の足側に偏位し
一体化していたため剥離困難であり、副角子宮摘出
とともに摘出せざるを得ず、温存は困難であった。右
卵管は正常で留血腫を認めなかった。副角子宮の全
貌を確認し、シーリングデバイスを用いて血管処理を
行い、副角子宮を摘出し

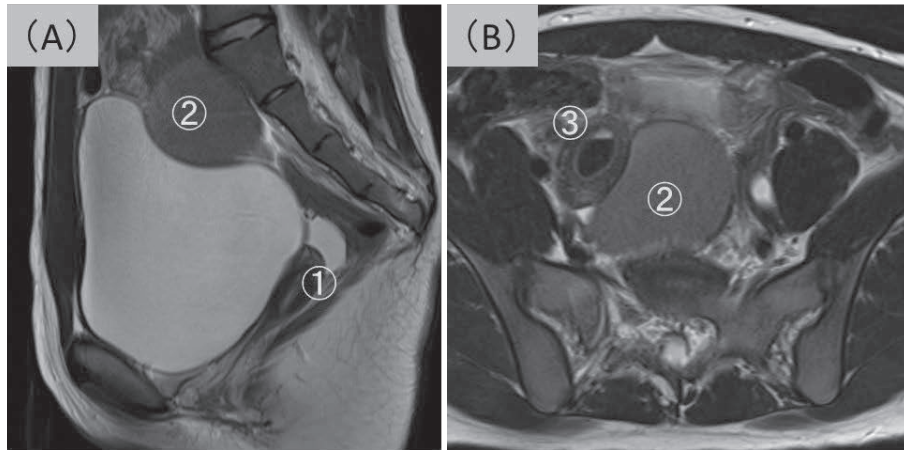


図3 MRI T2強調画像

- (A) 矢状断：左側に偏位した子宮(①)と骨盤内頭側に右卵巣子宮内膜症性嚢胞(②)を認めた。
(B) 水平断：右卵巣子宮内膜症性嚢胞に隣接して子宮留血腫を伴う副角子宮(③)を認めた。

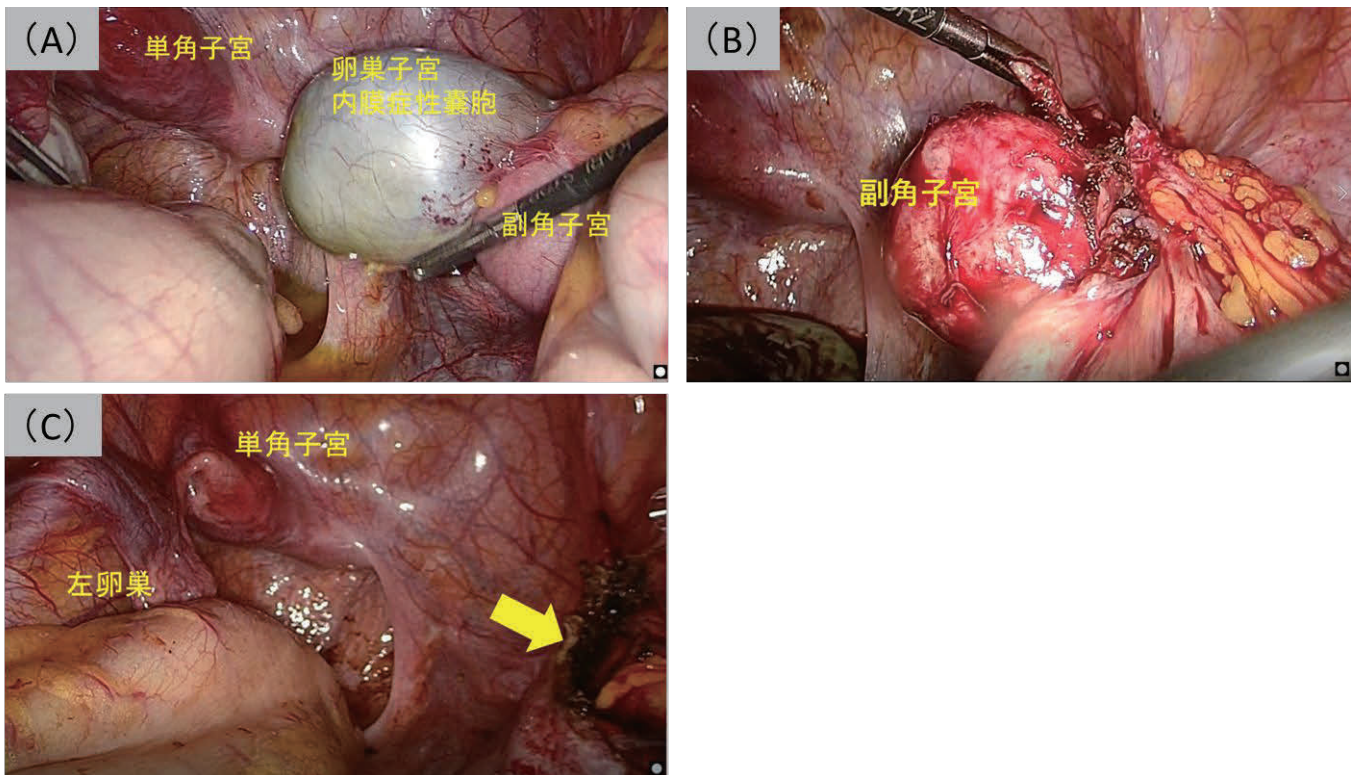


図4 術中所見

- (A) 単角子宮と副角子宮は離れて位置しており、副角子宮の足側に接して右卵巣子宮内膜症性嚢胞を認めた。
(B) 右卵巣子宮内膜症性嚢胞切除後。
(C) 副角子宮および右付属器切除後(矢印)。

た(図4)。右後腹膜腔を展開したが、副角子宮に流入する子宮動脈は同定できなかった。右尿管は術前診断の通り欠損していた。摘出した副角子宮および右付属器は回収バックに納め、臍部の切開創を延長して回収した。手術時間は1時間7分、出血量は少量であった。手術摘出標本の肉眼所見(図5)では、副角子宮は小鶏卵大であり、嚢胞性腫瘍は表面平滑で内腔に充実部はなく褐色沈着を認めた。術後病理組織検査(図6)では、副角子宮に子宮筋層と内膜上皮を認めたが、頸部留血腫や頸管由来の円柱上皮を認めなかった。嚢胞性腫瘍が頸管や腔

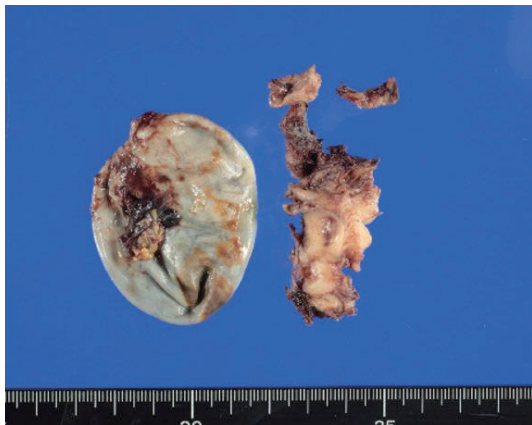


図5 手術摘出標本

副角子宮は小鶏卵大。嚢胞性腫瘍は表面平滑で内腔に充実部はなく褐色沈着を認めた。

から発生した腫瘍の可能性も考えられたが、頸管由来の円柱上皮や腔由来の重層扁平上皮は認めなかった。よって、重複子宮・片側子宮頸部閉鎖に伴う頸部留血腫・同側腎無形成を呈するWunderlich症候群や重複子宮・重複腔・片側腔閉鎖に伴う腔留血腫・同側腎無形成を呈するOHVIRA症候群は否定された。嚢胞性腫瘍の上皮下に内膜間質様の成分、周囲に組織球の集簇、ヘモジデリンの沈着を認め、右卵巣子宮内膜症性嚢胞と診断された。以上より、非交通性副角子宮を伴う単角子宮、右卵巣子宮内膜症性嚢胞、右腎尿管無形成と診断した。術後経過は良好であり、術後に月経困難症の改善を認めた。現在副作用のため薬物治療は行わず、半年毎の定期検診を行っている。

考 案

先天性子宮形態異常は、胎生期の左右のミューラー管の癒合不全や形成不全により発生し、有病率は女性全体の6.7%、不妊症の女性の7.3%、反復流産既往のある女性の16.7%と報告されている^{2,3)}。先天性子宮形態異常の分類として、ASRM分類(American Society for Reproductive Medicine, 米国生殖医学会)が広く知られており、単角子宮はType IIに分類される。単角子宮と副角子宮の交通の有無や副角子宮の機能性内膜の有無によりさらに細分化され、交通のある副角子宮を有

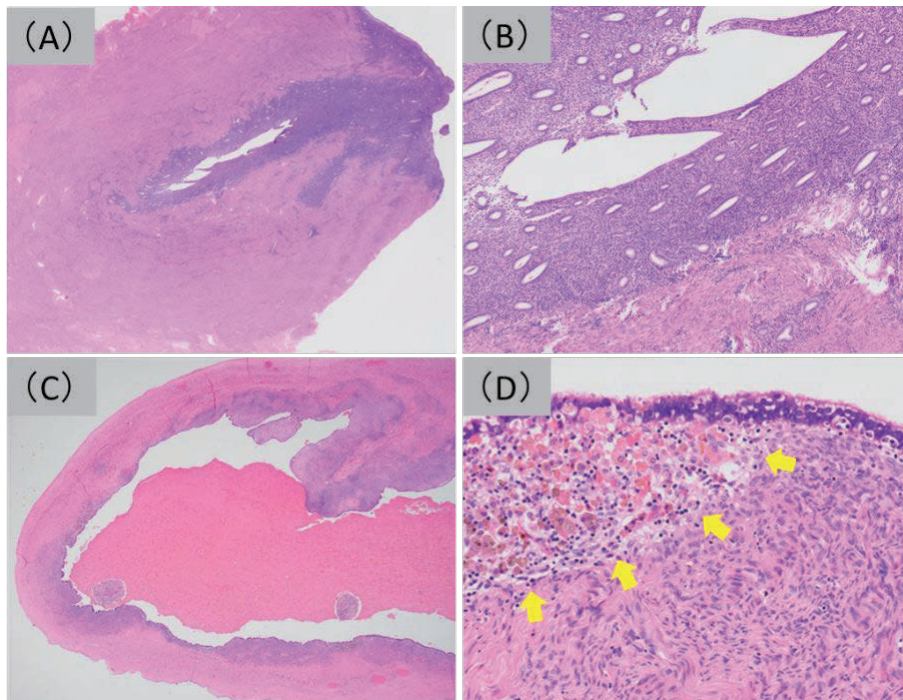


図6 病理組織標本HE染色

- (A) 副角子宮内膜：HE染色(×100)
 (B) 副角子宮内膜：HE染色(×200)
 (C) 嚢胞性腫瘍(右卵巣子宮内膜症性嚢胞)：HE染色(×100)
 (D) 嚢胞性腫瘍(右卵巣子宮内膜症性嚢胞)：HE染色(×200)
 上皮下に内膜間質様の成分、周囲に組織球の集簇、ヘモジデリンの沈着(矢印)を認めた。

する(Ⅱa), 交通のない副角子宮を有する(Ⅱb), 機能性内膜のない副角子宮を有する(Ⅱc), 副角子宮なし(Ⅱd)の4つのタイプに分けられる⁴⁾。本症例は, ASRM分類TypeⅡbに相当した。単角子宮の頻度は, 先天性子宮形態異常の2.4~10%, 全女性の0.1%と報告されている。非交通性副角子宮を有するタイプ(TypeⅡbとTypeⅡc)が最も一般的であり, 本症例と同じTypeⅡbは単角子宮の20~25%にみられる⁵⁾。機能性内膜を有する非交通性副角子宮では, 子宮留血腫や卵管留血腫, 子宮内膜症に伴う月経困難症, 下腹部痛を引き起こすことが多く, その頻度は55%と報告されている⁶⁾。子宮内膜症は, 非交通副角子宮の21~33%に合併すると報告され⁷⁾, 本症例も副角子宮側の付属器領域に高度な内膜症性癒着を認めており, 非交通性副角子宮の機能性内膜からの月経血逆流が内膜症性病変の原因となった可能性が推察された。また, 単角子宮に先天性腎泌尿器系異常の合併は比較的多くみられる。Heinonenの報告では, 単角子宮患者34例のうち13例(38%)に腎泌尿器系異常を認め, 8例に片側腎欠損, 3例に骨盤腎, 1例に馬蹄腎, 1例に回転異常腎を認めていた⁵⁾。

子宮奇形の診断には, まず超音波検査が有用であり, 超音波検査で子宮奇形が疑われた場合, MRI検査を施行することで子宮形態異常の詳細な評価が可能である。また子宮卵管造影や子宮鏡検査は, 子宮内腔の形状や副角子宮との交通を把握するのに有用であるが, 若年者や内診困難な患者では施行不可能な場合もある⁸⁾。本症例は若年であり, 性交渉歴もないため, 経腹および経直腸超音波検査とMRI検査で診断を行った。

機能性内膜を有する副角子宮では, 月経困難症の改善・子宮内膜症や副角妊娠の予防目的に, 基本的には外科的切除が選択される。近年では, 手術侵襲・整容面・術後癒着の観点から腹腔鏡下手術が多く選択されている。手術手技に関しては, 副角子宮と単角子宮の結合状態, 尿管の有無や走行, 併発する子宮内膜症の重症度により難易度が異なるとされる^{9, 10)}。副角子宮と単角子宮が強固な結合織で広基性に連結している場合, 境界面の判断が難しく, 単角子宮側の筋層損傷や穿孔をきたし, 将来妊娠時に子宮破裂のリスクになる可能性がある。単角子宮側の筋層を残しつつ, 月経モリミナの再発予防に副角子宮の内膜組織を完全に除去する必要がある。そのため, 単角子宮からマージンを取り, 副角子宮を円錐状に切除して機能性内膜を除去することで, 単角子宮側の筋層損傷を最小限に抑え, 縫合の余地を残す手術方法である“coring-type resection”が提唱されており¹¹⁾, 国内でも報告例がみられる¹⁾。また, 子宮穿孔のリスク軽減のため術中に子宮鏡を併用し, 腹腔鏡の鉗子で子宮鏡スコープを触知したり, 光源を透見したりすることが境界判断に有用であったと報告している¹¹⁾。尿管に関して

は, 副角子宮側の尿管が欠損している場合は尿管に対する配慮は不要であるが, 前述した通り, その他の腎尿路系異常を合併する場合や尿管走行が異なる場合があるため, 術前に画像評価を行い, 尿管走行を把握しておくことが重要である¹²⁾。子宮動脈に関しては, 子宮動脈本幹が子宮頸部に入り子宮動脈上行枝のみ副角子宮へ走行する場合や子宮動脈本幹が直接副角子宮へ流入する場合があると報告されている。また単角子宮と副角子宮が強固な結合織で連結している場合, 副角子宮は同側の子宮動脈からだけでなく対側の弓状動脈からも栄養されていることがある¹⁾。本症例では, 副角子宮と単角子宮は離れて位置し, 強固な連結を認めなかったため, 副角子宮の切断面に関して判断に苦慮することはなかった。ただ, 副角子宮側の卵巣子宮内膜症性嚢胞および付属器周囲の内膜症性癒着が高度であり, 癒着剥離操作に時間を要した。また右卵巣子宮内膜症性嚢胞が副角子宮の足側に位置しており, 卵巣は温存困難であった。シーリングデバイスを用いることで, 出血をコントロールしながら, 安全に副角子宮を切離することができた。また, 副角子宮側の腎尿管欠損を術前に確認していたため, 尿管損傷のリスクはなかった。今回術中に副角子宮側の子宮動脈の同定は困難であった。黒瀬らは, 子宮動脈の術前の評価として3D再構築CT検査が有用であったと報告している⁶⁾。子宮動脈の走行を術前に把握しておくことで, 出血のリスク軽減となり, 安全な手術操作が可能になると考えられた。

腹腔鏡下副角子宮切除術後の分娩方法について, Sawada et al.は, 腹腔鏡下副角子宮切除術を施行した7例を対象群, 他の子宮奇形33例をコントロール群として比較検討し, 帝王切開分娩はそれぞれ57.1%と57.5%であり, 腹腔鏡下副角子宮切除術を施行した7例中3例は問題なく経膈分娩が可能であったと報告している¹³⁾。また, Kanno et al.は, 腹腔鏡下副角子宮切除術後4カ月で妊娠成立し, 妊娠30週より切迫早産で管理入院を行い, 妊娠40週で経膈分娩となった症例を報告している¹⁴⁾。本症例は, 単角子宮への侵襲はほとんどなかったため, 妊娠時は経膈分娩も許容されると考えられるが, 単角子宮は正常子宮と比べ容積が小さいため, 切迫早産や妊娠中・分娩時の子宮破裂のリスクに関して十分な情報提供が必要と考える。副角子宮切除後の避妊期間や分娩方法に関しては明確な基準がないため, 今後さらに症例を蓄積し検討していく必要がある。

結 語

非交通性副角子宮は, 先天性子宮形態異常の中でも稀な疾患であるが, 若年女性の月経困難症の原因の一つとして, 正確な診断や適切な治療が求められる。腹腔鏡下手術は, 月経困難症の改善や妊娠合併症の予防に有効な

治療法と考えるが、安全な手術を行うためには、術前に十分な画像評価を行うことが重要である。術後も子宮内膜症の予防治療や将来の妊娠分娩管理など課題が多く、慎重に経過をみていく必要がある。

文 献

- 1) 高石侑, 安田美樹, 増田望徳, 池田真規子, 安藤有希子, 佐藤浩, 田口奈緒, 廣瀬雅哉. 腹腔鏡下 coring-type resectionを行った非交通性副角子宮の一例. 産婦の進歩 2021 ; 73(3) : 334-339.
- 2) Saravelos SH, Cocksedge KA, Li TC. Prevalence and diagnosis of congenital uterine anomalies in women with reproductive failure: a critical appraisal. Hum Reprod Update 2008; 14: 415-429.
- 3) Chan YY, Jayaprakasan K, Zamora J, Thornton JG, Raine-Fenning N, Coomarasamy A. The prevalence of congenital uterine anomalies in unselected and high-risk populations: a systematic review. Hum Reprod Update 2011; 17: 761-771.
- 4) The American Fertility and Society. The American Fertility Society classification of adhesion, distal tubal occlusion, tubal occlusion secondary to tubal ligation, tubal pregnancies, Mullerian anomalies and intrauterine adhesions. Fertil Steril 1988; 49: 944-955.
- 5) Heinonen PK. Unicornate uterus and rudimentary horn. Fertil Steril 1997; 68: 224-230.
- 6) 黒瀬喜子, 鮫島浩輝, 木崎雄一郎, 松永茂剛, 長井智則, 高井泰, 關博之. 術前の3D再構築CT評価により安全に手術を施行し得た腹腔鏡下副角子宮切除術の1例. 日産婦内視鏡学会誌 2020 ; 36 : 158-162.
- 7) Yasmin J, Ajay R, Harry S, Sonia G. The presentation and early diagnosis of the rudimentary uterine horn. Obstetrics & Gynecology 2005; 105: 1456-1467.
- 8) 五十嵐なつみ, 福田淳, 高橋道. 2回目の月経で緊急手術となった若年女性の非交通性副角子宮症例. 臨床婦人科産科 2019 ; 73(7) : 693-697.
- 9) Shirk GJ, Johns A, Redwine DB. Complications of laparoscopic surgery: how to avoid them and how to repair them. J Minim Invasive Gynecol 2006; 13: 352-359.
- 10) Falcone T, Hemmings R, Khalife S. Laparoscopic management of a unicornuate uterus with a rudimentary horn. J Gynecol Surg 1995; 11: 105-107.
- 11) Akdemir A, Ergenoglu A, Yeniel A, Sendag F, Karadadas N. Corning-type laparoscopic resection of a cavitated non-communicating rudimentary horn under hysteroscopic assistance. J Obstet Gynaecol Res 2014; 40: 1950-1954.
- 12) Luigi F, Stefano B, Giovanni Z, Nicola B, Valentino B. Laparoscopic removal of the cavitated noncommunicating rudimentary uterine horn: surgical aspects in 10 cases. Fertil Steril 2005; 83 (2): 432-436.
- 13) Sawada M, Kakigano A, Matsuzaki S, Takiuchi T, Mimura K, Kumasawa K, Endo M, Ueda Y, Yoshino K, Kimura T. Obstetric outcome in patients with a unicornuate uterus after laparoscopic resection of a rudimentary horn. J Obstet Gynecol Res 2018; 44: 1080-1086.
- 14) Kanno Y, Suzuki T, Nakamura E, Goya K, Nishijima Y, Shinoda M, Hayashi M, Izumi S. Successful term delivery after laparoscopic resection of a non-communicating rudimentary horn in a patient with a unicornuate uterus: a case report. Tokai J Exp Clin Med 2014; 39: 59-63.

【連絡先】

田中奈緒子
 広島市立広島市民病院産科・婦人科
 〒730-8518 広島県広島市中区基町7-33
 電話：082-221-2291 FAX：082-223-2236
 E-mail：nh-bepl2@outlook.jp