

症 例 報 告

術前診断が困難であった傍卵巣(傍卵管)嚢腫茎捻転の
1例

小橋優子, 今西好正, 上條 謙, 境野晋二郎, 吉松美佐子, 中島康雄,
濱野志穂¹⁾, 佐藤百合子¹⁾, 脇坂宗親¹⁾, 小田中美恵子²⁾
聖マリアンナ医科大学 放射線科, 同 小児外科¹⁾, 同 診断病理¹⁾

Torsion of Paraovarian Cyst : A Case Report

Yuko Kobashi, Yoshimasa Imanishi, Ken Kamijo, Shinjiro Sakaino, Misako Yoshimatsu,
Yasuo Nakajima, Shiho Hamano¹⁾, Yuriko Sato¹⁾, Munechika Wakisaka¹⁾,
Mieko Odanaka²⁾

Department of Radiology, Pediatric surgery¹⁾, and Pathology²⁾, St.Marianna University School of Medicine

Abstract In children, torsion of a paraovarian cyst is rare and very difficult to diagnose before surgery, because almost all patients with a paraovarian cyst have no symptoms until there is torsion, hemorrhage or rupture. In this paper, we report the case of a 12-year-old girl who had torsion of one of several paraovarian cysts.

She had had right lower abdominal pain for 3 days. Abdominal ultrasonography and CT showed multiple cystic lesions in her pelvic cavity at the left dorsal aspect of the uterus, which had thickened walls and different contents. We diagnosed torsion of an ovarian tumor with intracystic hemorrhage. However at operation, several cysts were seen along the left fallopian tube, the largest one of which had been twisted 720 degrees around the fimbriae of the tube. The twisted cyst showed hemorrhage and necrosis and the fimbriae congestion. Paraovarian cyst is pathologically classified into mesothelial, mesonephric, and paramesonephric types. The cysts in our case belonged to the mesothelial type. As mesothelial type cysts are sensitive to gonadal hormones, they show a tendency to become larger and have more complications in children than the others. Thus, a radiologist should remember paraovarian cysts in the differential diagnosis of ovarian cysts in a girl at puberty.

Keywords Torsion, Paraovarian cyst, Wolffian duct, CT, Ultrasound

はじめに

傍卵巣(傍卵管)嚢腫は、胎生期の中腎管(Wolff管)の遺残が嚢胞化したもので^{1,2,3)}、全子宮付属

器の腫瘍性病変の約10~33%^{1,3)}を占める比較的頻度の高い腫瘍であるが、無症状であるため報告される症例の年齢は30~40歳代に多く、他の婦人科疾患や消化器疾患で開腹した時に偶然見つかる

原稿受付日：2005年9月12日、最終受付日：2005年10月26日

別刷請求先：〒216-8511 神奈川県川崎市宮前区菅生2-16-1 聖マリアンナ医科大学放射線科 小橋優子

ものが多い^{1,3,4)}。こうしたことから小児での傍卵巣(傍卵管)嚢腫の報告は稀である^{1,2)}。

今回我々は右下腹部痛を主訴に来院したが、痛みの部位と腹部超音波検査やCT検査で異常所見の部位が異なっていたため術前診断に苦慮した傍卵巣(傍卵管)嚢腫茎捻転の症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

症例：12歳女児

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：3日前より夜間になると消失する臍中心の腹痛を自覚した。その翌日朝より右下腹部痛となり、38度台の発熱も認めるようになった。食欲低下も見られたため近医を受診し、虫垂炎が疑われたため当院救命センターへ紹介となった。

来院時は、右下腹部痛と発熱は認められたが、嘔吐や下痢は見られなかった。初潮は半年前にあったが、それ以降月経は見られていなかった。

入院時現症：

身長 142.3cm, 体重 39.8kg, 体温 38.5度, 血圧 110/70mmHg, 脈拍 118/分, McBurney点より2

横指上方を最強点として下腹部全体にBlumberg徴候を認めた。腸管蠕動音の減弱も腹部全体に認めた。また、直腸診では直腸から2時方向に圧痛を認めた。

血液および血液生化学検査所見：

WBC 20100/ μl (正常値：4000~8000/ μl)、CRP 9.23mg/dl (正常値：0.3mg/dl以下)で、その他の血液検査は正常範囲内であった。

画像所見：

腹部単純X線写真臥位像では、腸管ガスの拡張はなく、明らかな異常は指摘出来なかった。次に、虫垂炎検索のために右下腹部超音波検査(Fig.1a)を行ったが、右下腹部に盲腸に連続して正常の虫垂が確認された。骨盤腔超音波検査(Fig.1b)では、子宮体部の左背側に数珠状に連続する低輝度病変を認めた。病変の境界は明瞭、低く均一な内部エコーを伴っており、嚢胞性病変であることが示唆された。左卵巣は同定出来なかった。

腹部造影CT(Fig. 2)では、腹部超音波検査と同様に、子宮体部左背側に集簇した嚢胞が多数見られ多発性嚢胞性病変あるいは多胞性嚢腫と考えられた。嚢胞壁は中等度の造影効果を示しており、大

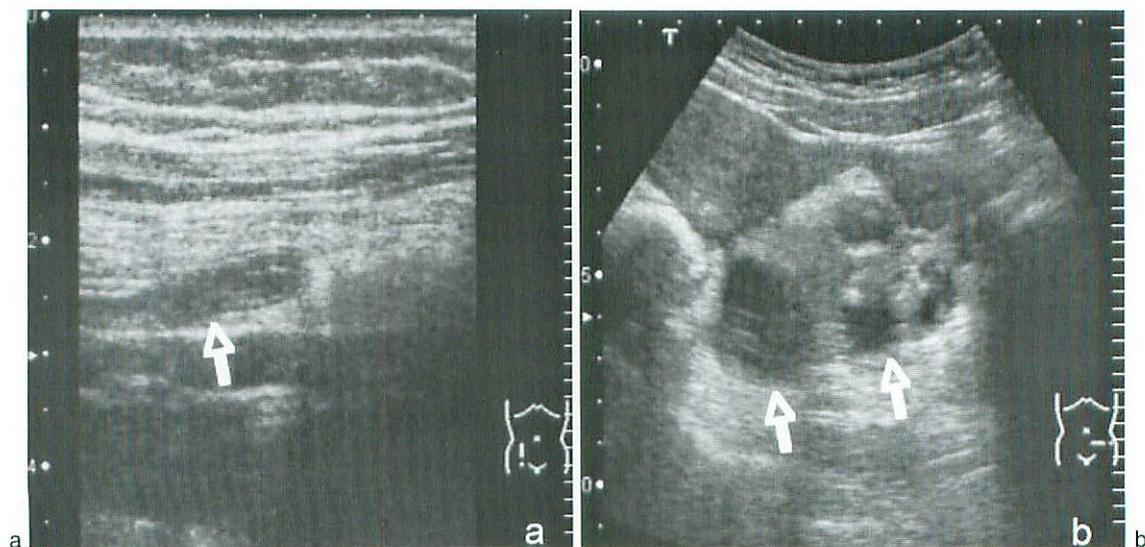


Fig.1 Transabdominal ultrasonography

a : Sagittal view of the right lower quadrant of the abdomen for evaluation of the appendix. The appendicitis is normally identified (arrow). There is no evidence of acute appendicitis.

b : Horizontal view of the left lower quadrant of the abdomen for evaluation of the uterus and adnexa.

Multiple cystic lesions with thick walls are depicted at the dorsal aspect of the uterus. These show a pearl necklace appearance.

きさは最大の嚢胞で直径約4 cmであった。一部の嚢胞では、他の嚢胞の内部よりその内部の濃度がやや高く嚢胞内出血の可能性を示唆していた。また左卵巣静脈の怒張と同時に、卵管および子宮内腔の拡張が認められた。腹膜の肥厚および骨盤腔内脂肪濃度の上昇があり腹膜炎の合併が疑われた。

診断と経過：

腹部超音波検査所見と腹部造影CT所見で、子宮と左卵管が同定されており、左卵巣が同定できなかったことから、卵巣腫瘍茎捻転が最も考えられたが、卵管拡張や嚢胞壁が造影されていることから卵管膿瘍、嚢胞に一部出血を伴ったものがある

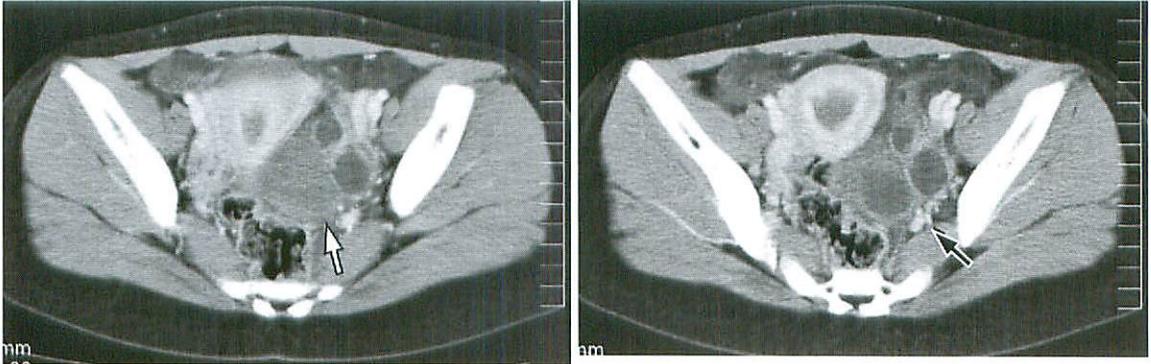


Fig.2 Pelvic images of abdominal CT

Multiple cystic lesions can be identified in the pelvic cavity at the left dorsal aspect of the uterus. The cystic walls of the lesions are moderately enhanced. Ovarian veins are dilated (black arrow), which indicates the possibility of venous congestion or inflammation. In addition, one of the cystic lesions has a slightly higher density of cystic content than the others (white arrow), which indicates the possibility of intracystic hemorrhage. Fat tissue in the pelvic cavity shows a dirty fat appearance, which indicates the possibility of peritonitis.

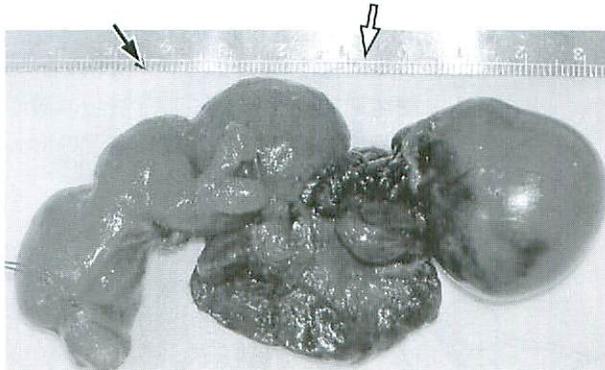


Fig.3

Extirpated left fallopian tube and cystic masses. Multiple cystic masses are present along the left fallopian tube (black arrow). The fallopian tube shows edematous change. The largest cyst is twisted clockwise through several complete turns around the fimbriae of the tube (white arrow). The twisted mass and fimbriae of the tube include hemorrhagic and necrotic areas.

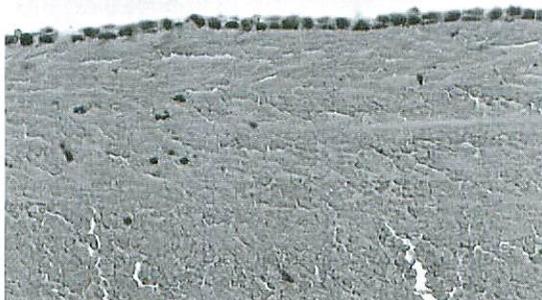


Fig.4 Histological section (H-E)

Cystic mass includes a single layer of cuboidal epithelium. Submucosal area shows necrotic change with hemorrhage.

ことよりチョコレート嚢胞が鑑別に挙げられた。患者の年齢、卵巣静脈の怒張所見より卵巣腫瘍を捻転と診断し緊急開腹を施行した。開腹所見では、左卵管は著明な浮腫性変化を認めた。左卵管に沿って数個の嚢胞が認められ、そのうちの卵管系近傍に存在しているひとつの嚢胞が卵管系を巻き込むように720度時計回りに捻転し出血壊死していた。左卵巣は正常であった。病理肉眼所見でも嚢胞性病変は卵管に沿って存在していた (Fig. 3)。捻転していた嚢胞の病理組織所見では、壁は一層のやや扁平な立方上皮で形成されており、粘膜下組織は出血と壊死で占められていた (Fig. 4)。最終診断は傍卵巣 (傍卵管) 嚢腫を捻転であった。

考 察

胎生期に生殖管として中腎管と中腎傍管 (Müller管) の2つが存在している。中腎管と中腎傍管は胎生第5～6週では生殖管としては未分化な形で存在するが、中腎管は胎生第4週の後期には胎生期の暫定的腎臓として発生する中腎の尿管として機能する。中腎傍管は、中腎の中皮の陥入によって中腎の外側に発生する生殖管で、中腎管と平行に走行して骨盤領域に達する。胎生第5週目から後腎が発生しはじめ、男児では、第8週からテストステロンが胎児の精巣から分泌されると、中腎管は尿管としての役割から、生殖管への分化を始め、精巣上体、精管、射精管を形成する。これに

対して女児では、女性生殖器の発生として中腎傍管が分化し、子宮および卵管を形成する。中腎管はホルモン依存性があるため、女児では通常退行変性していく。このときの退行変性がうまく行われずこの中腎管が遺残してしまうと、さまざまな名称で呼ばれる痕跡器官となる。具体的には、子宮外側壁に沿って子宮広韧带の間に管腔構造物として遺残すれば、ガルトナー管、嚢腫化すればガルトナー管嚢腫、中腎管の頭方端が残存すれば胞状垂、卵巣と卵管との間に残存する少数の盲状細管を卵巣上体、などが挙げられる⁵⁾ (Fig. 5)。傍卵巣 (傍卵管) 嚢腫はおそらくこれらの痕跡器官を総称したもので、狭義には卵巣上体を指している^{1-4,6)}。これらはすべて存在部位が異なるだけでいずれも中腎管の遺残であり、中腎管はもともと管状構造物であるため多数の嚢胞が存在する場合は数珠状に連なる傾向がある。本症例では、多数の嚢胞が卵管に沿って存在しており、中腎管の遺残を裏付ける所見であった。

傍卵巣 (傍卵管) 嚢腫の上皮組織は、病理組織学的に mesothelial type, paramesonephric type, mesonephric type の3種類に分類される^{1-4,6)}。頻度的には、mesothelial type もしくは mesonephric type の傍卵巣 (傍卵管) 嚢腫の報告が多い³⁾。特に mesothelial type は性ホルモン感受性があるので^{3,6)}、未産婦より経産婦に傍卵巣 (傍卵管) 嚢腫の頻度が高く、妊娠初期に傍卵巣 (傍卵管) 嚢腫の増大

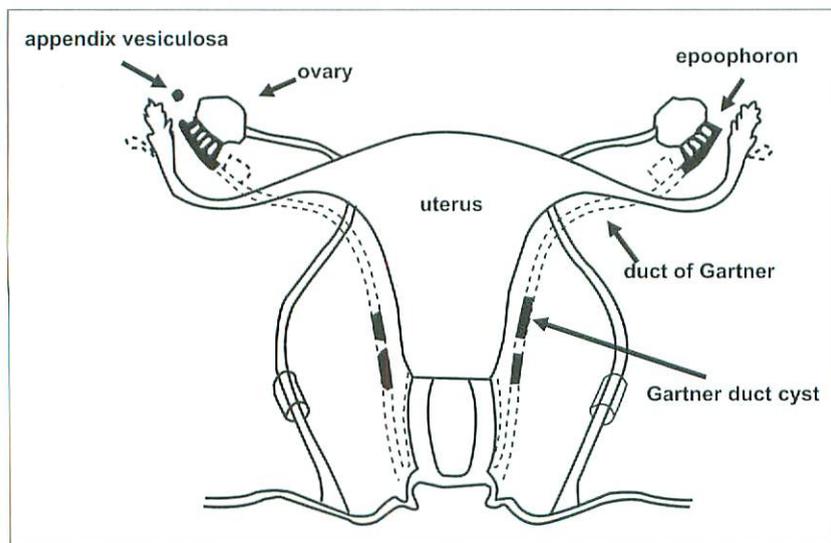


Fig.5 Paraovarian cyst
Paraovarian cysts remain Wolffian duct elements. The Wolffian duct is present along the Mullerian duct. Thus, paraovarian cysts arise alongside the uterus and ovary.

し捻転を起こす頻度が高いと考えられている^{6,7)}。またPepe F⁶⁾らは59例の傍卵巢(傍卵管)腫瘍の検討で11~15歳は3例(5.08%)、41~45歳では13例(22.03%)と報告している。Genadry R⁷⁾らの132例の傍卵巢(傍卵管)腫瘍の検討でも、10~19歳での頻度は5例(3.7%)と報告している。これらの報告を考慮しても、本症例は12歳であるため、稀であることがわかる。

小児の傍卵巢(傍卵管)腫瘍は、報告されているのは患児の年齢が二次性徴期前後で、大きさも直径5 cm以上のものが多く、捻転の頻度も高い。病理組織学的にはmesothelial typeのことが多い^{4,7)}。これらは恐らく性ホルモンの影響と考えられる。傍卵巢(傍卵管)腫瘍はもともと管状の構造が囊腫化しているため、卵管に沿って数珠状に囊胞が存在することが特徴で、それを腹部超音波検査やCTで捕らえることが重要と思われる。捻転が生じる場合、腹部造影CTで卵管の浮腫・不均一な造影効果と共に卵巢静脈の怒張や囊胞内出血が認められる。

小児の腹痛の原因は多岐にわたる。しかしながら小児は訴えがあいまいなことが多く、理学所見が取りづらいことも少なくない。特に年長女児の場合、二次性徴によって体型のみならず生殖器も大きく変わり、幼児や成人では見られないこの時期特有の性ホルモンの影響を受ける疾患があることも忘れてはならない。

おわりに

小児では稀な傍卵巢(傍卵管)囊腫茎捻転の1例を報告した。卵管に添うような形で数珠状に囊胞性病変を認めた場合、傍卵巢(傍卵管)囊腫を疑う必要があり、特に小児では二次性徴に伴って増大することが多く捻転で発見されることが多いので注意を要する。

●文献

- 1) Okada T, Yoshida H, Matsunaga T, et al : Paraovarian cyst with torsion in children. *J Pediatr Surg* 2002 ; 37 : 937-940.
- 2) Lurie S, Golan A, Glezerman M, et al : Adnexal torsion with a paraovarian cyst in a teenage girl. *The Journal of the American Association of Gynecologic Laparoscopies* 2001 ; 8 : 597-599.
- 3) Varras M, Akrivis Ch, Polyzons D, et al : A voluminous twisted paraovarian cyst in a 74-year-old patients : case report and review of the literature. *Clin Exp Obst & Gyn* 2003 ; 4 : 253-256.
- 4) Kishimoto K, Awaya H, Matsunaga N, et al : Paraovarian cyst : MR imaging features. *Abdom Imaging* 2002 ; 27 : 685-689.
- 5) Moore P : ムーア人体発生学(第6版). 東京, 医歯薬出版, 2003, p319-366.
- 6) Pepe F, Panella M, Pepe G, et al : Paraovarian tumors. *Eur J Gynaec Oncol* 1986 ; 3 : 159-161.
- 7) Genadry R, Parnley T, Woodruff JD : The origin and clinical behavior of the paraovarian tumor. *AM J Obstet Gynecol* 1977 ; 129 : 873-881.