

## 腹腔鏡手術を施行した多嚢胞性腹膜中皮腫の2例

京都第二赤十字病院 産婦人科

土屋 佳子 衛藤 美穂 南川 麻里

岡島 京子 山本 彩 加藤 聖子

福岡 正晃 藤田 宏行

**要旨：**多嚢胞性腹膜中皮腫は中皮由来の稀な良性腫瘍で、進行すると完全摘出が困難で再発の可能性が高い。当院で経験した多嚢胞性腹膜中皮腫の2症例を報告する。症例1は35歳、2経産。経膈分娩後の1ヵ月健診時に17cmの多房性腫瘍を指摘されMRIより多嚢胞性腹膜中皮腫を疑い腹腔鏡手術を施行した。病理診断は多嚢胞性腹膜中皮腫であった。術後約3ヵ月で再発し増大傾向であったため、術後9ヵ月で2度目の腹腔鏡手術を施行し腫瘍を摘出した。症例2は45歳、3経産。5cmの左卵巢腫瘍の診断で腹腔鏡手術を施行したが、腸間膜に播種した状態であり腫瘍減量のみで終了。組織診断後6ヵ月で2度目の腹腔鏡手術を施行し可能な限り残存腫瘍を摘出した。3年後、診断目的に3度目の腹腔鏡手術を施行し、術前経膈超音波検査では指摘できなかった小嚢胞病変を認め再発と考えられた。多嚢胞性腹膜中皮腫は再発しやすく低侵襲な腹腔鏡手術は治療・管理に適していると考えられる。

**Key words：**多嚢胞性腹膜中皮腫，腹腔鏡手術，再発，急性腹症

### 緒 言

多嚢胞性腹膜中皮腫は中皮由来の稀な良性腫瘍であり生殖年齢の女性に好発しやすいと言われている<sup>1)</sup>。腹膜は中皮細胞により構成されているため、多嚢胞性腹膜中皮腫は腹膜に覆われた臓器に発生するという性質がある<sup>1)</sup>。多嚢胞性腹膜中皮腫は腹膜に沿って播種し、大網や結腸・小腸など腹腔内臓器に広く進行するため<sup>1)</sup>、完全摘出が困難であり再発の可能性が高い。多嚢胞性腹膜中皮腫に関して世界でこれまで約130症例の報告があるが<sup>1)</sup>、腹腔鏡手術を行い治療・管理した症例報告は非常に少ない<sup>2)</sup>。今回我々は、多嚢胞性腹膜中皮腫に対し腹腔鏡手術を施行した症例を2例経験したので、文献的考察を加え報告する。

### 症 例 1

患者：35歳 2回経妊 2回経産(正常経膈分娩2回)  
既往歴：10歳 虫垂炎に対し虫垂切除術  
現病歴：自然妊娠し当院妊婦健診でフォローアップされ自然経膈分娩で第2子を出産した。妊娠経過で特記すべき異常を認めなかった。1ヵ月健診の際、経膈超音波検査で骨盤内に16cm大の多

房性嚢胞を認めた。

身体所見：腹部は平坦・軟で、圧痛・反跳痛は無く、腸蠕動音亢進・低下は認めなかった。

内診所見：子宮は鶏卵大・前屈であり、両側付属器領域及びダグラス窩に軟らかい腫瘍を触知した。

経膈超音波検査：子宮は正常大であり両側卵巢は描出できなかった。内部に均一な低エコー域を呈する多嚢胞性の腫瘍が骨盤内を占拠していた。

骨盤部単純MRI：ダグラス窩から子宮の頭側にかけて約16cmの多嚢胞性腫瘍を認め、腫瘍内部はT2強調像で高信号を呈しており内部に明らかな充実成分は認めなかった。両側卵巢は正常に描出されており腫瘍と連続しておらず、子宮に異常所見は認めなかった(図1)。

これらより多嚢胞性リンパ管腫もしくは多嚢胞性腹膜中皮腫、粘液性嚢胞腺腫などが鑑別疾患に挙げられた。診断及び治療目的に腹腔鏡手術を施行した。

手術所見：腹腔内には、子宮後壁とS状結腸との間、子宮広間膜後葉、直腸及び小腸表面など小骨盤内を占拠するように大小様々な嚢胞性病変を認めた。可能な限り嚢胞性病変を剥離・摘出した

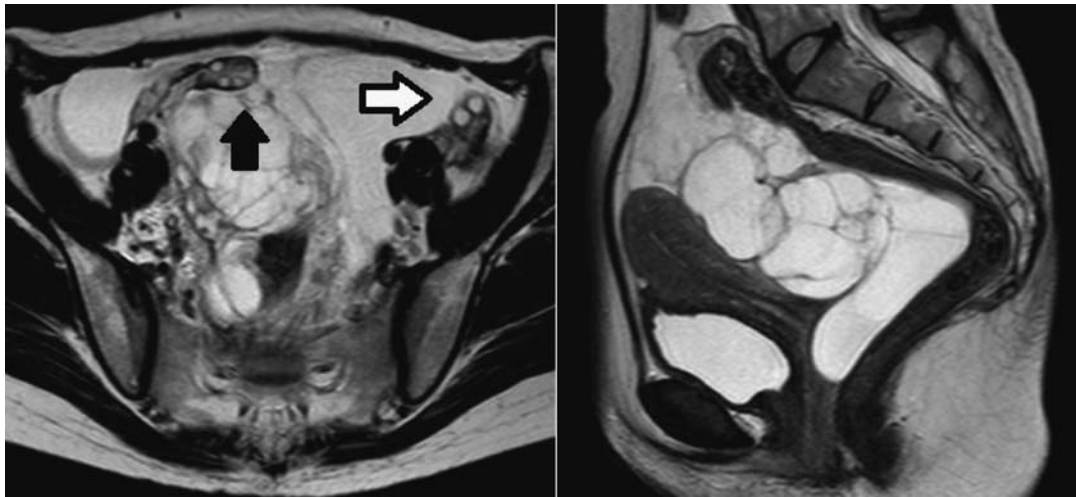


図1 骨盤部単純MRI (T2強調画像)

左 (水平断): 両側卵巣 (↑: 右卵巣 ⇨: 左卵巣) は正常に描出されている.  
右 (矢状断): ダグラス窩から子宮の頭側にかけて多嚢胞性病変を認める.

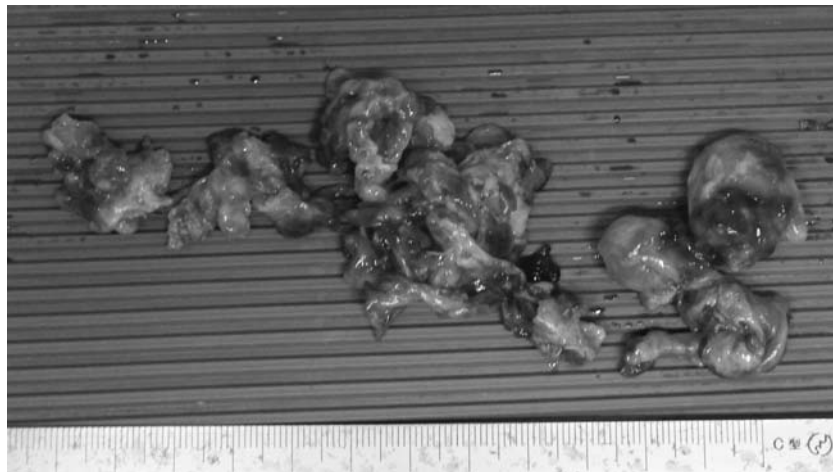


図2 摘出標本肉眼像

嚢胞性病変を多数認める

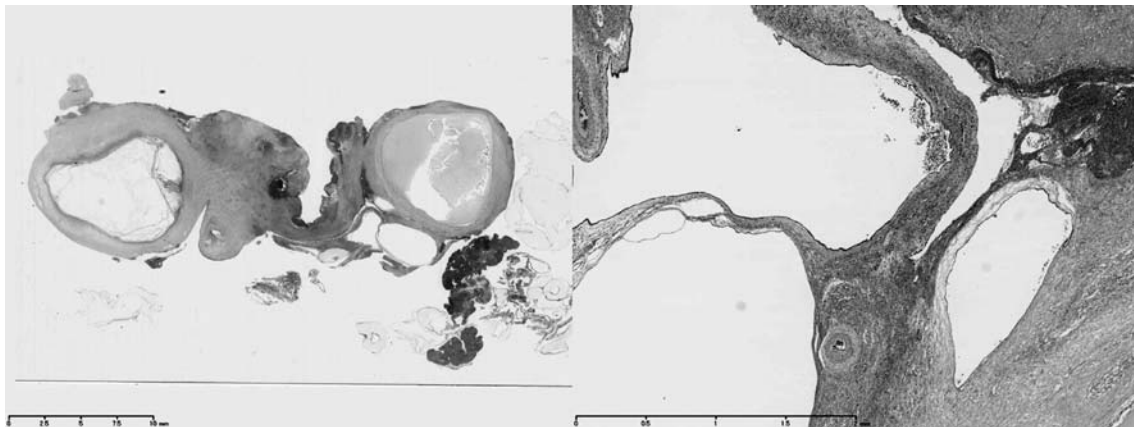


図3 (HE染色)

左: 種々の厚さの嚢胞壁を認める.  
右: 嚢胞壁内腔は一層の中皮細胞に覆われている.

(図2). 術中出血は350g, 所要時間は3時間26分で手術を終了した.

病理組織学的所見(図3): 切除された組織は種々の厚さの繊維組織で, 所々で一層の中皮細胞に覆われた嚢胞状部分を認め, 多嚢胞性腹膜中皮腫と診断した. 壁には出血やフィブリンの滲出, 炎症細胞浸潤などを伴っていた.

術後経過: 術後6ヵ月で経膈超音波検査にて子宮右側に5cm大の多房性の嚢胞を認め, 多嚢胞性腹膜中皮腫の再発と考えられた. 術後9ヵ月で再度腹腔鏡下手術を施行し, 前回の嚢胞性病変摘出部分に多嚢胞性腹膜中皮腫の再発を認めたため再度摘出術を施行した. 2度目の手術後10ヵ月に施行した経膈超音波検査でのフォローアップにて明らかな再発は認めていない.

## 症 例 2

患者: 45歳 3回経妊 3回経産(正常経膈分娩3回)

既往歴: 27歳 椎間板ヘルニア

現病歴: 3年6ヵ月前, 前医にて5cm大の境界悪性を疑う左多房性卵巣腫瘍に対し腹腔鏡下手術を施行された. 術中所見ではダグラス窩を占拠する多房性の腫瘍を認め, 腫瘍は腸管膜・後腹膜にまで播種していたため悪性の可能性を考慮し腹腔鏡下両側付属器切除術及び腫瘍減量術で手術を一旦終了とされた(図4). 病理組織診断で多嚢胞性腹膜中皮腫と診断され, 6ヵ月後2度目の腹腔鏡下手術を施行し可能な限りの腫瘍摘出及び焼灼が行われた. 小腸表面にも病変が確認されていた

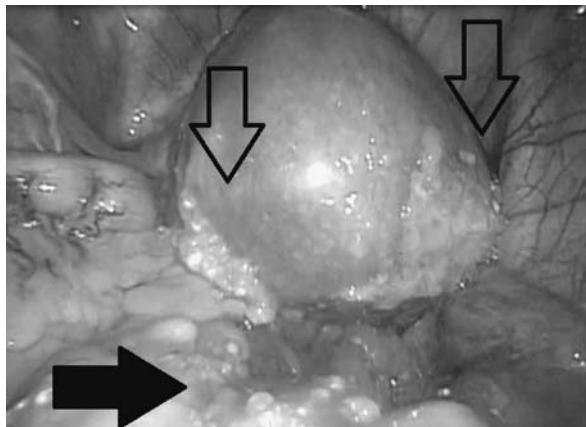


図4 術中所見(初回)

子宮の両側壁(⇓)やダグラス窩に嚢胞性病変あり, 直腸表面への播種(➡)が疑われる.

が焼灼困難であるため病変切除は不可能と判断し, その時点では良性疾患に対し腸管切除は過剰治療と考えられたため, 処置せずに手術終了とされた. 3年後画像診断上明らかな再発所見は認めないものの, 遺残病変があったことより再発の可能性は否定できず, 腹腔内観察目的に当院を紹介された. 本人に再発の可能性や腹腔内観察の必要性につき説明し, 腹腔内観察目的の腹腔鏡手術につきインフォームドコンセントを得た.

経膈超音波検査: 子宮は鶏卵大・前屈であり, 明らかな骨盤内再発は認めなかった.

手術所見: 肝・大網・ダグラス窩・腸間膜・壁側腹膜表面など, 前回手術で腫瘍を切除した箇所に一致して小嚢胞を認めた. 小腸表面に小嚢胞を認めたが, 2度目の手術時と比べ増大は認めなかった. また骨盤内の壁側腹膜焼灼部分に一致して腫瘍の再発を認めた. これより多嚢胞性腹膜中皮腫の再発が疑われた. 術中骨盤内の腫瘍は全て摘出及び焼灼することができた. 小腸表面の小嚢胞に対しては, 腸管損傷の無いよう可能な範囲で切除を行なった. 術中出血は5g, 所要時間は1時間25分で手術を終了した(図5).

病理組織診断(図6): 嚢胞壁は扁平化した一層の中皮細胞で覆われており, 多嚢胞性腹膜中皮腫と診断した.

術後経過: 術後経過は良好であり, 術後1年2ヶ月に施行した経膈超音波検査でのフォローアップにて明らかな再発は認めていない.

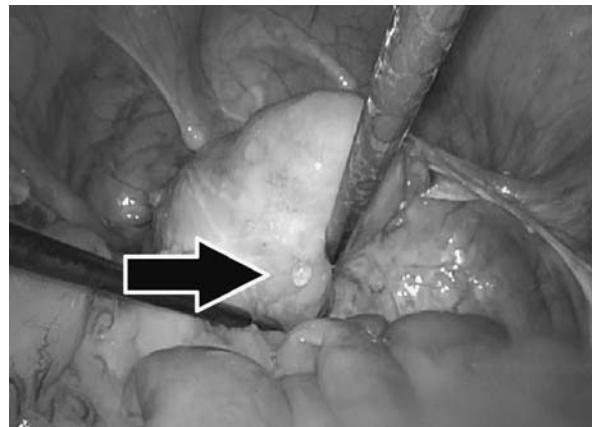


図5 術中所見(3回目)

前回手術で腫瘍を切除した箇所に一致して小嚢胞を認めた. ➡: 子宮後壁の再発病変

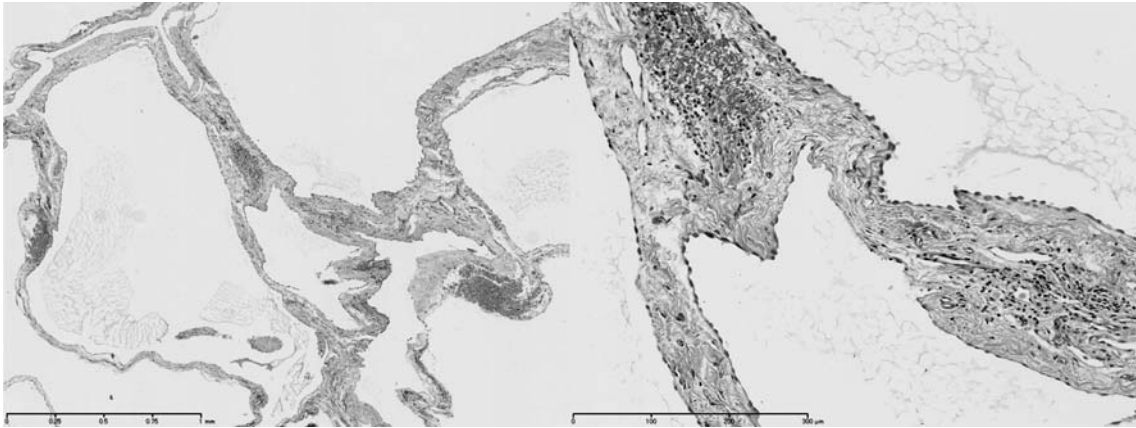


図6 (HE染色)

左：薄い嚢胞壁を認める。

右：嚢胞壁内腔は一層の中皮細胞に覆われている。

## 考 察

多嚢胞性腹膜中皮腫とは腹膜中皮由来で大小多数の嚢胞性病変として発生する大変稀な良性疾病である。1979年に初めて報告され、これまでに世界でおよそ130例の報告がある<sup>1)</sup>。日本では約20症例の報告がある<sup>3)</sup>。

多嚢胞性腹膜中皮腫は生殖年齢の女性に多く発症し、閉経後の発症は稀であると言われている。成因については反応性もしくは腫瘍性の二説があり、未だ確立されていない。反応性病変である説としては、腹腔内手術の既往、子宮内膜症や子宮筋腫の既往との関連性が報告されており、それらの慢性的な刺激により中皮細胞が腹膜に閉じ込められ、嚢胞を形成して増殖する機序が考えられている<sup>4)</sup>。一方、緩徐にはあるが進行・再発しやすい性質から腫瘍性病変という説がある<sup>1)</sup>。症例1では腹腔内手術の既往があったが、症例2では特に既往はなく、今回の2症例は二説を支持するものであった。

多嚢胞性腹膜中皮腫の再発に対し GnRHa (gonadotropin-releasing hormone analogue) や tamoxifen が有効という報告<sup>5,6)</sup>や、妊娠中に発見された症例で妊娠の中断が有効であったという報告<sup>7)</sup>があるため、多嚢胞性腹膜中皮腫はエストロゲン依存性の腫瘍である可能性が考えられている。症例1は生殖年齢であり妊娠中に腫瘍が増大したと推測されるため、多嚢胞性腹膜中皮腫がエストロゲン依存性腫瘍である可能性が考えられ

る。しかし症例2では初回手術時は41歳と生殖年齢であるが、初回手術にて両側付属器切除を施行した以後も腫瘍の再発を認めているため、多嚢胞性腹膜中皮腫の増大にはエストロゲン依存以外も存在していると考えられる。

多嚢胞性腹膜中皮腫の治療に関しては、外科的な完全切除のみが唯一の治療法と言われている。約27~75%と再発率が非常に高いことが報告されており<sup>4)</sup>、再発予防の積極的治療として腹膜切除を同時に行うことが推奨されている<sup>8)</sup>。またエストロゲンの抑制が治療に寄与する可能性もある。しかし多嚢胞性腹膜中皮腫は稀な疾患であるため、一般的な治療法や管理法は確立されていないというのが現状である。

通常良性腫瘍では再発を認めない場合、手術を施行することは一般的ではない。しかし多嚢胞性腹膜中皮腫は再発のリスクが非常に高く、再発初期は画像診断が困難である。そのため明らかな再発を認めない段階で、観察目的に腹腔鏡手術を行うことは有用であると考えられる。症例2では2度目の手術後3年経過した時点で、画像診断上明らかな再発は認めない状態で腹腔内観察目的に腹腔鏡手術を施行した。それにより再発病変が確認でき、また再発病変を摘出することができた。小腸表面の小嚢胞病変に関しては播種が進行する前に腫瘍減量を行うことができ、腹腔鏡手術は有用であったと考えられる。

腹腔鏡手術は低侵襲であり腹腔内を広く観察することが可能である。また、再発を認めたとして

も観察と同時に腫瘍摘出・焼灼を適宜施行することができるため、多嚢胞性腹膜中皮腫の治療及び管理に有用であると考え、今後も症例の検討を続けることにより、多嚢胞性腹膜中皮腫の治療および管理方法の確立が望まれる。

## 結 語

今回我々は多嚢胞性腹膜中皮腫に対し腹腔鏡手術を施行した症例を2例経験した。多嚢胞性腹膜中皮腫は良性腫瘍であるが再発率が非常に高く、時に急性腹症の原因となるため、早期の完全切除が望ましく、腹腔鏡手術は有用であると考えられた。

本論文の要旨は第130回近畿産科婦人科学会学術集会において発表した。

開示すべき潜在的利益相反状態はない。

## 参 考 文 献

- 1) Safioleas MC, Constantinos K, Michael S, et al. Benign multicystic peritoneal methelioma: A case report and review of the literature. *World J Gastroenterol* 2006; **12**: 5739-5742
- 2) Ricci F, Borzellino G, Ghimenton C, et al. Benign cystic mesothelioma in a male patient: surgical treatment by the laparoscopic route. *Surg Laparosc Endosc* 1995; **5**: 157-160
- 3) 錦見恭子, 大見健二, 西脇哲二, 他. Benign multicystic peritoneal mesothelioma の一例. *日産婦関東連会誌* 2009; **46**: 21-25
- 4) Sawh RN, Malpica A, Deavers MT, et al. Benign cystic mesothelioma of the peritoneum: a clinicopathologic study of 17 cases and immunohistochemical analysis of estrogen and progesterone receptor status. *Hum Pathol* 2003; **34**: 369-374
- 5) Letterie GS, Yon JL. Use of a long-acting GnRH agonist for benign cystic mesothelioma. *Obstet Gynecol* 1995; **85**: 901-903
- 6) Letterie GS, Yon JL. The antiestrogen tamoxifen in the treatment of recurrent benign cystic mesothelioma. *Gynecol Oncol* 1998; **70**: 131-133
- 7) Jerbi M, Hidar S, Ziadi S, et al. Benign multicystic peritoneal mesothelioma. *Int J Gynaecol Obstet* 2006; **93**: 267-268
- 8) Sethna K, Mohamed F, Marchettini P, et al. Peritoneal cystic mesothelioma: a case series. *Tumori* 2003; **89**: 31-35

## Laparoscopic surgery for Benign multicystic peritoneal mesothelioma : Report of two cases

Department of Obstetrics and Gynecology, Japanese Red Cross Kyoto Daini Hospital

Keiko Tsuchiya, Miho Eto, Mari Minagawa,  
Kyoko Okajima, Aya Yamamoto, Seiko Kato,  
Masaaki Fukuoka, Hiroyuki Fujita

### **Abstract**

BMPM (benign multicystic peritoneal mesothelioma) is a rare tumor that originates from the mesothelium and occurs primarily in females of reproductive age. Because BMPM arises from mesothelial cells, it is difficult to excise BMPM lesions completely, and the possibility of recurrence is high. We herein report two cases of BMPM treated at our hospital. Case\_1 : A 35-year-old female who had given birth to her second child one month previously was found to have a 17 cm multicystic tumor in her pelvis. We suspected the cyst to be BMPM on MRI and performed laparoscopic surgery. The pathologic diagnosis was BMPM. The patient developed recurrence of the BMPM after three months and six months later, she underwent a second laparoscopic procedure. Case\_2 : A 45-year-old female, para 3, had been diagnosed with a 5 cm left ovarian cyst three years earlier, and subsequently received laparoscopic surgery. However, the tumor was found to be broadly disseminated around the intraperitoneal space and into the mesentery and debulking surgery was therefore performed. The pathologic diagnosis was BMPM, benign tumor. Six months later, she underwent second-look laparoscopic surgery, and the residual cysts were excised to the extent possible. Three years after the first surgery, we performed laparoscopic surgery, with no obvious clinical findings of recurrence. Although recurrence of BMPM was subsequently detected, the progression of the lesion was inhibited. BMPM exhibits a tendency toward recurrence. Minimally invasive laparoscopic surgery is useful for curing and controlling BMPM.

**Key words** : benign multicystic peritoneal mesothelioma, laparoscopic surgery, recurrence, acute abdomen