

〔一般演題／症例・その他 2〕

## 月経血流出障害を伴うミューラー管奇形と子宮内膜症

熊本大学大学院生命科学研究部産科学婦人科学

岡村 佳則, 伊藤 史子, 本田 智子, 本田 律生  
田代 浩徳, 大場 隆, 片瀨 秀隆

### 緒 言

月経血流出障害を伴うミューラー管奇形では、初経年齢に達した後の比較的早期に下腹部痛を主訴に受診し、腔や子宮の留血症として発見されることが多い。このなかには、閉塞部の開放を行うことで症状の消失とともに将来の妊娠が期待される症例も認められる。そして、一部の症例では子宮内膜症の合併がみられることがあり〔1〕、この存在は将来の妊孕性を低下させる要因となる。

今回、月経血流出障害に対する手術によって子宮内膜症の合併が明らかとなったミューラー管奇形の2症例について報告し、子宮内膜症発生のリスク因子や臨床的対応について考察する。

### 症 例

症例1は18歳の未経妊の未婚女性で、初経は12歳、月経周期は28日型、整順であったが、持続期間が14日以上と過長月経を認めていた。月経時障害として中等度から重度の下腹部痛があり、鎮痛剤を内服していた。既往歴ならびに家族歴に特記すべき事項はない。初経以来の月経困難症と過長月経を主訴に近院を受診した。同院での超音波断層法ならびに骨盤部MRIで子宮奇形と腔留血症が疑われ、精査加療目的で当施設を紹介され受診した。

初診時の骨盤双合診では、腔壁左側の膨隆が認められ、その右背側に子宮と考えられる弾性硬の抵抗が触知された。経腔超音波断層法で子宮は双角子宮様で、左側子宮の下方に伸展する血液貯留像に加え左側卵巣にチョコレート嚢胞を疑わせる3cm大の腫瘤が認められた。血液

検査では、CA125、CA19-9、CEAのいずれも正常範囲内であった。当施設で再検した骨盤部MRIで重複子宮と診断し、上述した超音波断層法所見と同様に左側子宮に続く腔の留血症と左側卵巣チョコレート嚢胞が認められた。

重複子宮、左側腔閉鎖、左側卵巣チョコレート嚢胞の診断で、腔中隔切除術ならびに腹腔鏡下チョコレート嚢胞核出術を施行した。腹腔内の所見では、右側の子宮ならびに付属器には異常はみられなかったが、左側の卵巣・卵管周囲の癒着とともに卵管采部に接した卵巣表面にチョコレート嚢胞の形成が認められた(図1A)。術後診断は、重複子宮、左側腔閉鎖に伴う腔留血症、左側チョコレート嚢胞で、子宮内膜症のR-ASRMスコアは24点であった。卵巣嚢胞壁の病理組織学的検査では、ヘモジデリン沈着が認められたが、間質を伴う子宮内膜腺類似の腺管は確認されなかった(図1B)。

症例2は22歳の未経妊女性で、主訴は原発性無月経および下腹部痛である。既往歴ならびに家族歴に特記すべき事項はない。初経発来のないまま、20歳頃から3~4ヵ月毎に3から7日間持続する下腹部痛を自覚していたが、安静で軽快していた。21歳になり、強い下腹部痛を自覚したために近医産婦人科を受診した。経腹超音波断層法にて下腹部腫瘤を指摘されたため別医産婦人科を紹介され受診し、同院にて腔欠損ならびに子宮留血症が疑われ、当施設へ紹介となった。

初診時の診察所見では、乳房発育、恥毛発育ともにTannerⅢ度であり、外陰部に異常はな

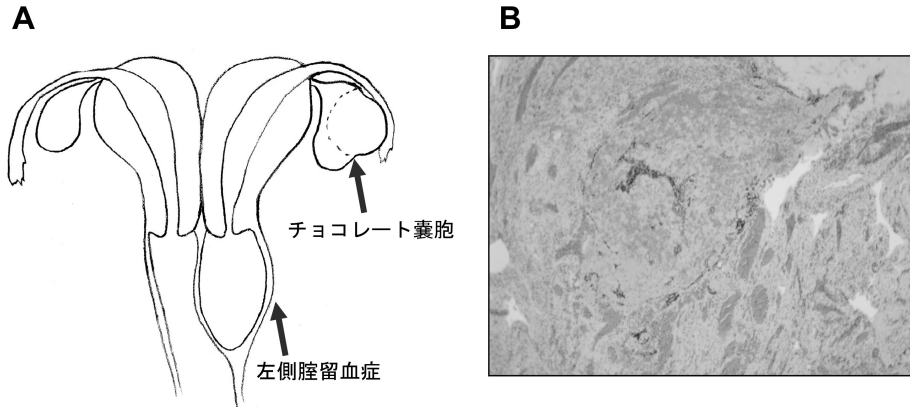


図1 症例1の病型ならびに卵巣嚢胞壁の病理組織学的所見

A: 重複子宮, 左側腔閉鎖に伴う腔留血症, 左側チョコレート嚢胞で, 子宮内膜症のR-ASRMスコアは24点であった.

B: 卵巣嚢胞壁にヘモジデリン沈着がみられるが, 間質を伴った子宮内膜腺類似の腺管は観察されない.

ヘマトキシリン・エオジン染色:  $\times 40$

かったが, 腔入口部が同定できなかった. 前医で施行された骨盤部MRIでは, 子宮体部の血液貯留と左側卵管の腫大が認められるとともに腔欠損と子宮頸部形成不全が考えられた.

手術では, 腹腔鏡による骨盤腔内の観察を先行した. その結果, 左側子宮体部と索状物を介して右側に痕跡状の子宮と正常外観の卵巣・卵管が認められた. 左側子宮体部に接して腫大した左側付属器が認められ, 癒着剥離の後に同定された左側卵管はソーセージ様に腫大し留血症を呈していた. 左側単角子宮, 右側痕跡子宮, さらに腔欠損, 左側子宮頸部形成不全とそれらに伴う左側子宮・卵管留血症と診断した (図2A). 次に開腹術に移行し, 左側子宮体部と新たに形成した腔腔を縫合し, 併せて左側卵管を切除した. 左側卵管の病理組織学的検査では, 卵管の平滑筋層に子宮内膜類似の腺管と間質が観察された (図2B).

### 考 察

過去8年間に当施設で経験した13例のミューラー管奇形のなかで, 症例1と同様に双頸双角子宮あるいは重複子宮に片側の腔閉鎖を合併していた8例を年齢順に表1に示した. この種のミューラー管奇形では, 流出障害側と同側の腎形成

不全をしばしば伴う [2-4]. 今回の8例にも泌尿器系の合併奇形が認められ, 腎臓奇形の症例では閉鎖側と同側に腎の欠損や低形成がみられた. これらの症例の多くは初経発来後の比較的早期に受診し治療が行われているが, 下腹部痛が軽度であった2症例は初経後10年以上を経過し受診している. 表2には, 症例2のように腔欠損あるいは腔横中隔がみられた5例を年齢順に示した. 症例2を除いた4例では, 月経に伴う子宮内膜の周期的剥離の開始から比較的早期に強い下腹部痛が出現していたことから, 早期の対応が可能であったと考えられる.

今回詳述した2症例は, いずれも月経による子宮内膜の周期的剥離が開始した時点から加齢に至るまでの期間が長い. この期間の月経期における月経血の逆流と, 閉塞に伴う留血症によって腹膜中皮が月経血に间断なく曝露されたことが, 子宮内膜症発生の一因と考えられた. Olive and Hendersonの報告で, 月経血流出障害を伴うミューラー管奇形で子宮内膜症を合併していた割合は77%で, 閉塞を伴わない時の合併が37%であるのに比較して有意に高頻度であった [1]. したがって, 症状の出現から可能な限り早期に月経血流出障害に対する治療を行うこと

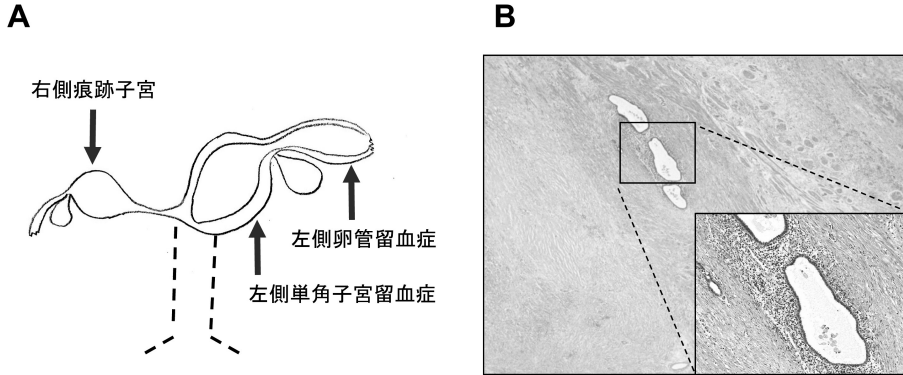


図2 症例2の病型ならびに卵管の病理組織学的所見  
 A: 左側単角子宮, 右側痕跡子宮, 腔欠損, 左側子宮頸部形成不全と, それらに伴う左側子宮・卵管留血症であった。  
 B: 卵管の平滑筋層に子宮内膜類似の腺管と薄い間質が認められる。  
 ヘマトキシリン・エオジン染色: ×20, インセット: ×50

表1 当施設におけるミューラー管奇形の症例①  
 —双頸双角子宮・重複子宮に片側流出路障害を伴う8例—

症例	初診時の年齢(歳)	診断	泌尿器系の奇形	治療/検査	子宮内膜症の有無
	12	双頸双角子宮 右側子宮頸部形成不全	右側腎欠損	子宮頸部形成術	-
	12	双頸双角子宮 右側腔閉鎖	右側腎欠損	腔中隔切除術	-
	13	双頸双角子宮 完全腔中隔, 左側腔閉鎖	左側腎欠損	腔中隔切除術	-
	15	双角子宮, 左側子宮頸部形成不全疑い	左側萎縮腎 左側尿管異所開口	子宮鏡検査 子宮卵管造影検査	-
	16	双頸双角子宮 左側腔閉鎖	左側腎低形成	腔中隔切除術	-
1	18	重複子宮 左側腔閉鎖	左側腎欠損	腹腔鏡下手術, 腔中隔切除術	左側卵巣
	26	双頸双角子宮 左側不完全腔閉鎖	左側腎欠損	腔中隔切除術	-
	28	非交通性重複子宮 右側腔閉鎖	両側重複尿管	右側腔壁開窓術	-

表2 当施設におけるミューラー管奇形の症例②  
 —腔欠損や腔横中隔を伴う5例—

症例	初診時の年齢(歳)	診断	治療/検査	子宮内膜症の有無
	13	腔欠損 子宮頸部低形成	Interceedを用いた腔形成術 切開・排液術	-
	13	処女膜閉鎖 腔横中隔	処女膜切開術 腔横中隔切除術	-
	14	腔欠損 子宮頸部低形成	腔形成術 (McIndoe's approach) 切開・排液術	-
	15	腔欠損	腔形成術 (McIndoe's approach) 切開・排液術	-
2	22	左側単角子宮, 右側痕跡子宮, 腔欠損, 左側子宮頸部形成不全	診断的腹腔鏡, Interceedを用いた腔形成術, 左側子宮体部・新生腔管吻合術, 左側卵管切除術, 子宮内膜症電気焼灼術	左側卵管

が臨床的に重要と考えられる。しかし、双頸双角子宮あるいは重複子宮に片側の腔閉鎖を合併するような症例では、健側子宮に定期的な月経が起こることから異常に気づかれず診断が遅れる傾向にある。ミューラー管奇形では泌尿器系の奇形をしばしば合併することから、これらの異常が手掛かりとなることもあり、月経歴を含めた病歴を詳しく聴取することがミューラー管奇形の早期発見に重要である。

#### 結 語

月経血流出障害を伴うミューラー管奇形では、月経血の逆流と閉塞に伴う留血症によって、腹膜中皮が長期にわたり月経血に間断なく曝露されており、子宮内膜症発生のリスク因子になっていることが考えられた。したがって、その特徴的な症状や合併する泌尿器系の奇形をもとに

早期に正確な診断に至り流出障害に対応することが、子宮内膜症の発生予防に重要であると考えられる。

#### 文 献

- [1] Olive DL et al. Endometriosis and mullerian anomalies. *Obstet Gynecol* 1987; 69: 412-415
- [2] Haddad B et al. Blind hemivagina: long-term follow-up and reproductive performance in 42 cases. *Hum Reprod* 1999; 14: 1962-1964
- [3] Zurawin RK et al. Didelphic uterus and obstructed hemivagina with renal agenesis: Case report and review of the literature. *J Pediatr Adolesc Gynecol* 2004; 17: 137-141
- [4] Gholoum S et al. Management and outcome of patients with combined vaginal septum, bifid uterus, and ipsilateral renal agenesis (Herlyn-Werner-Wunderlich syndrome). *J Pediatr Surg* 2006; 41: 987-992