

症例報告

外単径ヘルニア嚢内に発生した外性子宮内膜症の1例

滋賀医科大学外科学講座, 同 女性診療科¹⁾, 同 臨床検査部病理²⁾

清水 智治 龍田 健 村田 聡 山本 寛
山口 智弘 高島 明子¹⁾ 樽本 祥子¹⁾ 松原亜季子²⁾
九嶋 亮治²⁾ 谷 徹

26歳の女性で、4年前より子宮内膜症既往がある。1年前から左単径部に月経周期に伴い症状が変化する有痛性腫瘤を自覚していた。CT, MRI では左単径部に辺縁に造影効果のある多房性嚢胞を認めた。左単径部の外性子宮内膜症を疑った。全身麻酔下で右卵巣内膜症性嚢胞に対して腹腔鏡下子宮内膜症病巣除去術と単径部腫瘤摘出手術を行った。腹腔内から左内単径輪開存を観察し、前方アプローチにて単径管を開放すると暗赤色の腫瘤をヘルニア嚢内に確認した。ヘルニア嚢を高位結紮し、Marcy法にてヘルニア門を閉鎖した。病理組織学的検査では、ヘルニア嚢内に子宮内膜症の組織像を認めた。術後12か月経過後も左単径部腫瘤の再発は認めない。本邦での単径部外性子宮内膜症160例を集計したところ、ヘルニア嚢内に発生したのは34例であった。女性の単径部腫瘤の診断の際には、単径ヘルニアの鑑別診断の一つとして本症も考慮すべきであると思われた。

はじめに

女性に発生する単径ヘルニアは男性に比べて頻度が低いですが、卵巣や卵管の滑脱といった男性には認められない特異的な鑑別診断を必要とする。単径部に発生する子宮内膜症の頻度は、全子宮内膜症のうち約0.4~0.8%と報告されており極めてまれな疾患である¹⁾²⁾。今回、我々は子宮内膜症の治療歴のある26歳の女性で、画像診断にて単径部に発症した外性子宮内膜症性腫瘤を疑い、腹腔鏡下に外単径ヘルニアの合併を確認し、前方アプローチによりヘルニア嚢内の子宮内膜症組織を摘出した症例を経験した。本邦での単径部外性子宮内膜症の報告例160例を集計したところ、単径部ヘルニア嚢内に外性子宮内膜症が存在した症例は34例であった。単径部外性子宮内膜症と単径ヘルニアとの関連、修復法などに関して詳細に検討し報告する。

症 例

患者：26歳、女性

主訴：月経困難症、左単径部腫瘤

既往歴：子宮内膜症にて4年間の治療歴あり。

現病歴：1年ほど前から左単径部腫瘤を自覚していた。近医にて単径ヘルニアを疑われ、右側子宮内膜症の同時手術を奨められたために当院女性診療科に入院となった。

現症：左単径部に約3cmの有痛性、弾性軟の腫瘤を触知した。体位により大きさは変わらず、還納は不可能であった。腫瘤は月経周期に伴い腫瘤増大し疼痛が増強するとのことであった。

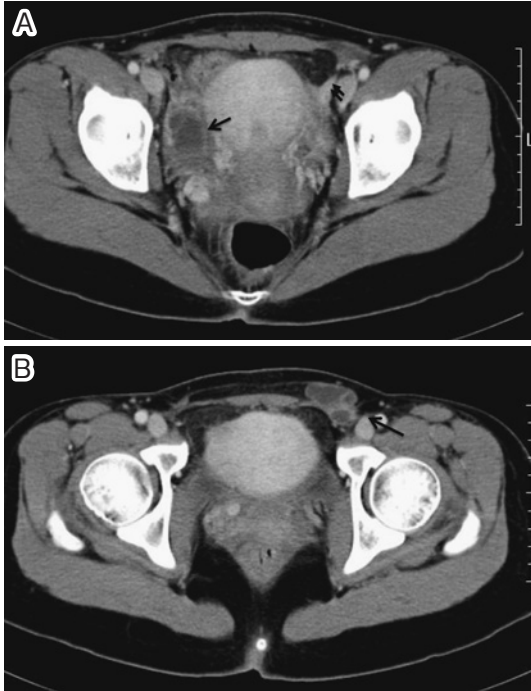
血液検査所見：CA125 59U/mLを認める以外は異常所見を認めなかった。

腹部CT：右卵巣に嚢胞性病変を認めた。左単径部の嚢胞性病変と子宮との間には造影効果を示す索条物が認められた(Fig. 1A)。左単径部には辺縁には造影効果のある多房性嚢胞性病変を認めた(Fig. 1B)。左卵巣が明らかでないために、左卵巣の滑脱ヘルニアも疑われた。右卵巣に一致して嚢胞性病変を認めた。

<2009年9月16日受理>別刷請求先：清水 智治
〒520-2192 大津市瀬田月輪町 滋賀医科大学外科学
講座

Fig. 1 Abdominal CT scan

A : cystic lesions enhanced by contrast media were observed in the right ovary (single arrow). A cord component connecting to the left uterus that was enhanced by contrast media (double arrows). B : A cystic lesion was also recognized in the left groin (single arrow).



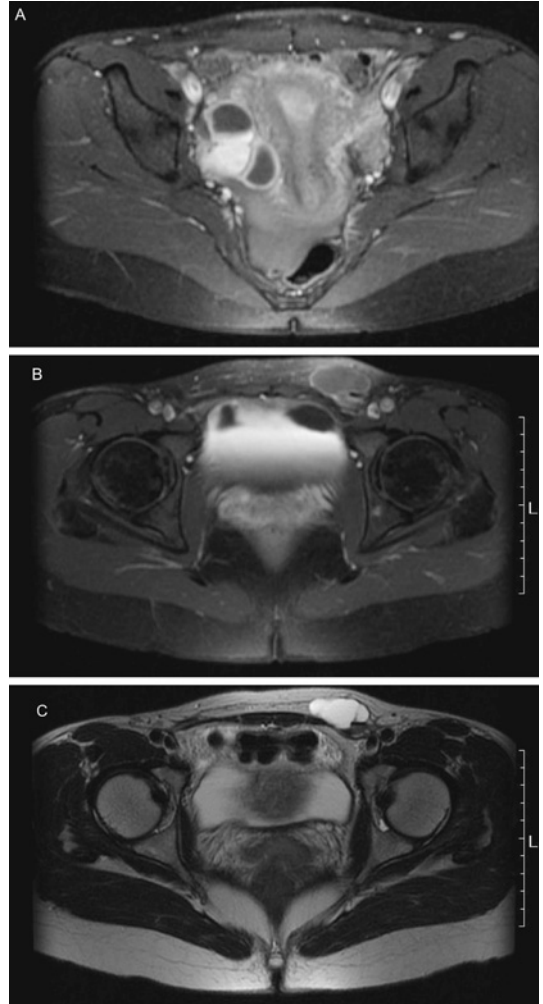
腹部MRI：右卵巢にT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号を有する部分とT1強調画像で高信号、T2強調画像低信号の部分と混在する嚢胞性病変を認めた (Fig. 2A)。左鼠径部に内部がT1強調画像で低信号 (Fig. 2B)、T2強調画像で高信号を呈する多房性嚢胞性病変 (Fig. 2C) が認められた。

以上より、左鼠径部の腫瘍は、左卵巢の滑脱ヘルニアまたは鼠径管内に発症した外性子宮内膜症を疑った。右卵巢内膜症性嚢胞の治療として、全身麻酔下に腹腔鏡下子宮内膜症病巣除去術が予定されたので同時に左鼠径部腫瘍に対する治療も行うこととなった。

手術所見：腹腔鏡での観察では左卵巢は腹腔内に存在し、右内鼠径輪は閉鎖しているが (Fig. 3

Fig. 2 Abdominal MRI scan

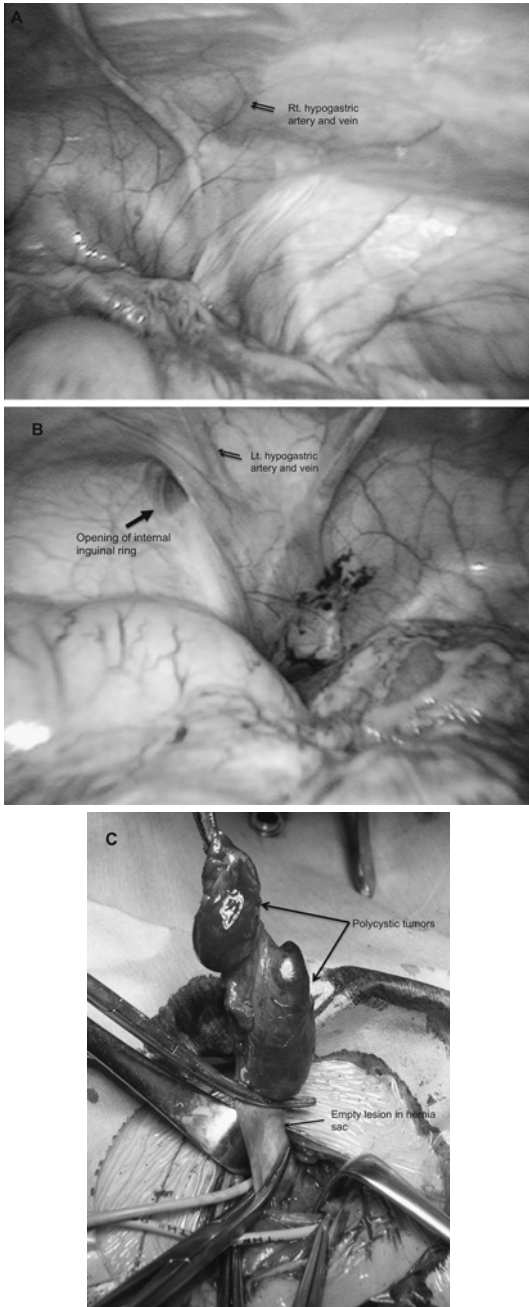
Polycystic lesions that showed high and low intensity area were observed in the right ovary in T1 image (A). Polycystic lesions were also observed that showed low intensity area in T1 image (B) and high intensity area in T2 image (C) in the left groin.



A)、左内鼠径輪が開大していることが確認できた (Fig. 3B)。骨盤内では、子宮内膜症に伴う病変と出血が観察された。まず、腹腔内の処置が行われた。腹腔鏡下での腹腔内からのアプローチでは鼠径部腫瘍が不完全切除となる可能性が考えられたため、前方アプローチで左鼠径部腫瘍の手術を行った。鼠径管を開放すると暗赤色の腫瘍を認めた。末梢側で円靭帯を切離し、腫瘍を慎重に剥離

Fig. 3 Operative findings

A: The right internal inguinal ring was closed by laparoscopic view at the right groin. B: The left internal inguinal ring was opened by laparoscopic view at the left groin. The opening of left internal inguinal ring (single arrow), Left hypogastric artery and vein (double arrows) C: The wine-colored tumor in the terminal of hernia sac that was connected to the left internal inguinal ring. We confirmed that the inside of the hernial sac was connected to the intra-abdominal cavity. The tumor was resected with the hernial sac ligated at the level of the pre-peritoneal fat.



すると腫瘍は円靭帯と癒着しており内単径輪に連続していた。内単径輪のレベルでは、暗赤色の腫瘍は認めず、ヘルニア囊（腹膜組織）として確認できた（Fig. 3C）。その部分で開放すると腹腔内への連続性が確認できたのでヘルニア囊内に発生した外性子宮内膜症と判断した。

ヘルニア門（内単径輪）の直径は1cmであり、日本ヘルニア学会の単径部ヘルニア分類に従って分類するとI-Iであった。ヘルニア囊を腹膜前脂肪が確認できるレベルで高位結紮し、Marcy法にてヘルニア門を閉鎖し手術を終了した。術後経過は良好であり、術後4日目に退院となった。術後12か月を経過して左単径部腫瘍の再発は認めていない。

病理組織学的検査所見：右卵巣囊腫組織は内部に子宮内膜間質および腺管を認め、腫瘍性変化は認めなかった（Fig. 4A）。左単径部ヘルニア囊内部にも右卵巣囊腫内の変化と同様の組織像を認め（Fig. 4B）、ヘルニア囊内に発生した外性子宮内膜症と診断した。

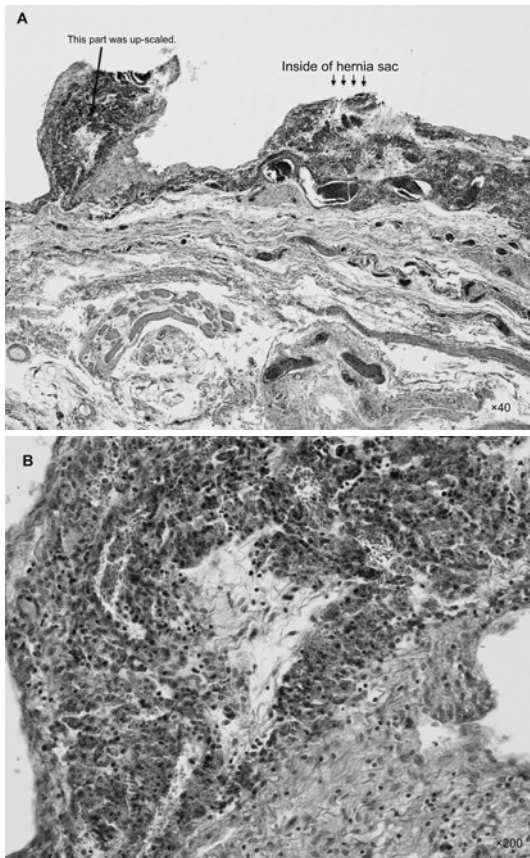
考 察

子宮内膜症とは、子宮内膜または子宮内膜様組織が異所性に発生する良性増殖性病変である。子宮内で発生する内性子宮内膜症と、子宮外に発生する外性子宮内膜症に大別される。外性子宮内膜症の発生部位別の頻度は、卵巣38%、骨盤腹膜・ダグラス窩21%、直腸・結腸14%、仙骨子宮靭帯8.1%、卵管7.5%であるとされている³⁾。

単径部に発生するものは0.4~0.8%であるとされている¹⁾²⁾。単径部に発生する子宮内膜症に関しては、医学中央雑誌の1983年から2009年までで「単径部」、「子宮内膜症」をキーワードにて検索を行ったところ、会議録と原著論文を含めて142編の報告がある。このうち、医学中央雑誌に記載されていない19編を加え、重複する症例を整理したところ、集積しえた範囲では、本症例も含めて160症例の単径部子宮内膜症の報告があった。そのうち、本症例のようにヘルニア囊内に発生したものは、単径ヘルニア囊内に32例と大腿ヘルニア囊内に2例の合計34症例であった。これまでの報告では集積症例数が少なく、十分な検討がされてい

Fig. 4 Pathologic findings

A: Endometrial glands and bleeding observed inside the left hernia sac. B: The ciliated cells observed in the inside of hernia sac were epithelial components. Many hemosiderin-laden macrophages were found. Tumor-like changes were not observed.



い。以下に、160症例の詳細な検討を報告する。

単径部外性子宮内膜症の平均発症年齢は、37.9歳であった。右110例(68.8%)、左32例(20.6%)、両側2例(1.3%)であり、原因は不明であるが右側に多い傾向にあった。患者の主訴としては、単径部の疼痛7例(4.4%)、腫瘍38例(23.8%)、有痛性腫瘍106例(66.3%)であった。これらの症状の月経との関連を認めたものは78例(48.5%)であり、関連を認めなかった症例は44例(27.5%)であった。単径部での発生部位の詳細は、円靭帯57例(35.6%)、ヘルニア嚢内32例(20.0%)、皮膚・皮下18例(11.3%)、Nuck管10例(6.3%)、単径

管内3例(1.9%)、大腿ヘルニア嚢内2例(1.3%)、リンパ節1例(0.6%)、後腹膜1例(0.6%)、単径靭帯1例(0.6%)であった。単径部ヘルニア嚢内に子宮内膜症由来する腫瘍が存在した症例は34症例(21.3%)であった。ヘルニア嚢内に子宮内膜症組織が存在しない症例でもヘルニアが併存した症例は33症例(20.6%)あり、合わせると単径部外性子宮内膜症には67症例(41.9%)に単径部ヘルニアが合併していた。ヘルニアが合併した症例での修復方法が判明したものは、Table 1のごとくである。さまざまな修復方法が施行されているが、1998年以降の症例でメッシュを用いた報告が増加している。

単径部疼痛・腫瘍の症状と月経周期との関連を約半数で認めることから、診断には十分な病歴聴取を行うことが重要であると考えられる。子宮内膜症のマーカーであるCA125の上昇を認める報告もある。腫瘍の穿刺吸引細胞診を行い、確定診断を得た症例報告⁴⁾があるが、子宮内膜組織の播種となる可能性もあり慎重に検討されるべきである⁵⁾。画像診断としては、超音波検査、腹部CTなどで嚢胞性腫瘍として認められるが、特徴的なものは報告されていない。月経周期による変化を捕らえるために、時期をずらして画像検査を行うことが診断に有用であるとの報告もある⁵⁾。

治療としては、手術療法、放射線療法、内分泌療法などがあるが、ほとんどの報告症例で手術が行われており、その予後も良好である。本邦報告例160症例では4症例で内分泌療法を施行された症例があるが1例のちに手術が行われている。単径部子宮内膜症を発生母地としたclear cell carcinomaの報告例⁶⁾もあり正確な病理組織学的診断には外科切除が必要であると考えられる。子宮内膜組織の播種や取り残しによる再発症例の報告⁷⁾もあるので、外科的切除に際しては十分に注意を払う必要がある。本症例では、腹腔鏡での観察では左内単径輪が開大していることが確認できた。単径ヘルニアの根治術として腹腔鏡を用いた手術の選択が可能であるが、腹腔内からのアプローチでは、ヘルニア嚢と腫瘍の関係が把握できていないことや完全切除が困難である可能性があ

Table 1 Review of 160 Japanese case reports of inguinal endometriosis

1) Age (mean ± S.D.) 37.9 ± 7.1 years old	
2) right : 110 (68.8%), left : 33 (20.6%), bilateral : 2 (1.3%), unknown : 15 (9.4%)	
3) Chief complains	
Inguinal pain : 7 (4.4%)	Inguinal tumor : 38 (23.8%)
Inguinal painful tumor : 106 (66.3%),	Dysmenorrheal : 1 (0.6%)
Unknown : 8 (5.0%)	
4) Are the symptom related to menstruation?	
Yes : 78 (48.8%), No : 44 (27.5%), Unknown : 38 (23.7%)	
5) Existence of external endometriosis	
Round ligament : 57 (35.6%),	Inguinal hernia sac : 32 (20.0%)
Skin/Subcutaneous tissue : 18 (11.3%),	Nuck duct : 10 (6.3%)
intra-inguinal cannal : 3 (1.9%),	Femoral hernia sac : 2 (1.3%)
Lymph node : 1 (0.6%),	Retro-peritoneum : 1 (0.6%)
Inguinal ligament : 1 (0.6%),	Unknown : 35 (21.9%)
6) The methods of hernia repair	
(67 cases are complicated with hernia in the groin.)	
Plug and Mesh : 6 (9.0%)	High ligation : 6 (9.0%)
Ileo-pubic tract repair : 5 (7.5%)	Bassini method : 4 (6.0%)
Marcy method : 4 (6.0%)	PHS : 3 (4.5%)
Kugel method : 2 (3.0%)	Unknown : 37 (55.0%)

り、前方アプローチを選択した。術前に本症を疑う際には、前方アプローチによる切除が推奨されたと考えられた。

本症例では、ヘルニア嚢と円靭帯の切除後のヘルニア門修復に関しては、Marcy法による修復を行った。当教室では、妊娠に関する単径ヘルニア修復用メッシュの安全性に関しては確立されていないことから、妊娠の可能性のある女性の単径ヘルニア修復には原則的にメッシュの使用は避けるようにしている。1998年以降は、単径ヘルニアに合併した外性子宮内膜症の切除後のヘルニア修復にメッシュを用いた症例⁸⁾の報告が増加している。右単径ヘルニアの治療にメッシュプラグ法を行い、その後、恥丘部に異所性子宮内膜症が発症した症例が報告されている⁹⁾。この症例では、4.5cmの腫瘤を全摘出したことが報告されているが、メッシュを摘出したかどうかは不明である。術後は外性子宮内膜症の再発無く経過しているようである⁹⁾。万一、外性子宮内膜症が再発した際には、ヘルニア修復に対するメッシュの使用は再手術を困難にさせる要因となりうるので、その使用に際

しては十分な注意が必要と考える。

文 献

- 1) 足高善彦：発生部位と症候。臨婦産 46：20—21, 1992
- 2) Jimenez M, Miles RM : Inguinal endometriosis. Ann Surg 151 : 903—911, 1960
- 3) 土岐利彦, 藤井信吾：子宮内膜症. 外科治療 74 : 100—108, 1995
- 4) 富田涼一, 黒須康彦, 丹正勝久ほか：右鼠径部子宮内膜症の1例と本邦報告例の検討. 外科診療 29 : 1097—1103, 1987
- 5) 松尾洋一, 林 周作, 宇佐見詞津夫ほか：鼠径部子宮内膜症の1例. 日臨外会誌 61 : 3369—3373, 2000
- 6) Ahn GH, Scully RE : Clear cell carcinoma of the inguinal region arising from endometriosis. Cancer 67 : 116—120, 1991
- 7) 牛込充則, 蛭田啓之, 亀田典章ほか：両側単径部に発生した子宮内膜症. 東邦医会誌 42 : 412—417, 1995
- 8) 安 炳九, 大垣雅晴, 藤井宏二ほか：単径ヘルニアに合併した子宮内膜症の1例. 日臨外会誌 65 : 1980—1983, 2004
- 9) 森田有紀子, 岩井昭樹, 柴田真一ほか：恥丘部に生じた異所性子宮内膜症の1例. 西日皮 66 : 40—42, 2004

A Case Report of External Endometriosis in the External Hernia Sac

Tomoharu Shimizu, Takeshi Tatsuta, Satoshi Murata, Hiroshi Yamamoto,
Tomohiro Yamaguchi, Akiko Takashima¹⁾, Yoshiko Tarumoto¹⁾, Akiko Matsubara²⁾,
Ryoji Kushima²⁾ and Tohru Tani

Department of Surgery, Department of Obstetrics and Gynecology¹⁾ and Department of Clinical Laboratory
Medicine²⁾, Shiga University of Medical Science

A 26-year-old woman treated four-years for endometriosis presented with one year of expanding left inguinal swelling painful during menstruation. Computed tomography and magnetic resonance imaging showed contrast-enhanced right ovarian cystic lesions, and left inguinal multilocular cysts, connected to the uterus by a contrast-enhanced cord. Based on a preoperative diagnosis of sliding hernia of the left ovary or the left inguinal external endometriosis, the right ovarian endometrioid cyst and the left inguinal tumor were laparoscopically excised under general anesthesia. The left internal inguinal ring was opened in an approach from the abdominal cavity. The wine-colored tumor in the hernia sac was confirmed when the inguinal canal was opened anteriorly. The tumor was resected and the hernial sac ligated at the preperitoneal fat level. The hernial hilus was closed by the Marcy method. Pathology confirmed endometriosis in the hernial sac. The woman has remained free from inguinal pain and tumor in the 12 months since surgery. We review 160 Japanese case reports on groin endometriosis. Groin hernia sac endometriosis was found only 34 cases in the Japanese literature. This example of rare external endometriosis in the groin is an excellent reminder of one of the differential diagnoses of female inguinal hernia.

Key words : inguinal hernia, Nuck duct, female

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 43 : 466—471, 2010]

Reprint requests : Tomoharu Shimizu Department of Surgery, Shiga University of Medical Science
Seta, Tsukinowa-cho, Otsu, 520-2192 JAPAN

Accepted : September 16, 2009