# Peritoneal inclusion cystの腸管穿孔が保存的加療で改善した1例


| メタデータ | 言語: jpn<br>出版者: 静岡産科婦人科学会<br>公開日: 2022-03-24<br>キーワード (Ja):<br>キーワード (En):<br>作成者: 古川, 琢麻, 堀越, 義正, 米澤, 真澄, 水野, 薫子<br>メールアドレス:<br>所属: |
|---|---|
| URL | http://hdl.handle.net/10271/00004095 |

静岡産科婦人科学会雑誌 (ISSN 2187-1914)
2022 年 第 11 巻 第 1 号　71頁

# Peritoneal inclusion cyst の腸管穿孔が保存的加療で改善した 1 例

# Case report of perforation between a peritoneal inclusion cyst and intestinal tract improved by conservative treatment

静岡市立静岡病院　産婦人科
古川琢麻、堀越義正、米澤真澄、水野薫子

Department of Obstetrics and Gynecology, Shizuoka City Shizuoka Hospital
Takuma FURUKAWA, Yoshimasa HORIKOSHI, Masumi YONEZAWA, Kaoruko MIZUNO

キーワード：Peritoneal inclusion cyst、fistula、clear cell carcinoma、CA125

〈概要〉

Peritoneal inclusion cyst（PIC: 腹膜封入嚢胞）とは、術後の癒着や腹膜の炎症により腹膜の液体吸収機能が低下した結果、限局性に液体貯留が生じた状態を指す。手術療法を施行しても約 30-50%と高確率で再発することが知られており、症状がなく悪性を疑う状態でなければ経過観察となることが多い。今回我々は、PIC と腸管との間に瘻孔を形成した症例を経験したので報告する。56 歳、G0P0、下腹部腫瘤感を主訴に当科を受診した。16cm 大の充実性腫瘤と CA125 の軽度上昇を認め、卵巣癌の術前診断で腹式単純子宮全摘、両側付属器切除、大網部分切除、骨盤・傍大動脈リンパ節郭清、虫垂切除術を施行した。最終病理診断は明細胞癌(stage IC3)であった。術後 TC (PTX+CBDCA)療法を 6 コース施行し、化学療法終了後の CT で骨盤内に長径 11cm 大の嚢胞性病変を認め PIC が疑われた。その後、外来経過観察中に 38 度台の発熱があり再診となった。炎症反応の亢進と、CT で PIC と回腸との瘻孔形成を認めた。抗菌薬と絶食の保存的加療のみで軽快し、その後 PIC の消失を確認した。現在最終 CT から半年経過し、著変なく経過観察中である。PIC が存在する場合、発熱や腹痛などの症状を認めた時は PIC による腸管穿孔を鑑別の一つとして考慮する必要があると考えられた。

Abstract

Peritoneal inclusion cyst (PIC) refers to a condition in which fluid retention occurs locally as a result of decreased peritoneal fluid absorption function due to postoperative adhesions and peritoneal inflammation. The rate of recurrence is high at 30-50% even after surgical treatment, and it is often followed up unless there is no symptom and malignancy is suspected. We report a case of fistula formation between PIC and the intestinal tract. A 56-year-old woman, G0P0, visited our department with a complaint of a feeling of a mass in the lower abdomen. A 16-cm solid tumor and slight increase in CA125 were observed, and abdominal total hysterectomy + bilateral salpingo-oophorectomy + partial omental resection + pelvic and paraaortic lymph node

dissection + appendectomy were performed under a diagnosis of ovarian cancer. The final pathological diagnosis was clear cell carcinoma (stage IC3). Six courses of postoperative TC therapy were performed and CT after the end of chemotherapy revealed a cystic lesion with a major axis of 11 cm in the pelvis, suggesting PIC. During the outpatient follow-up, she developed 38-degree fever and revisited the hospital. CT demonstrated PIC and ileal fistula formation. Antibiotics and conservative treatment by fasting management led to the disappearance of PIC. Six months have passed since the last CT and the patient is being followed up without significant changes. In the presence of PIC, if symptoms, such as fever and abdominal pain, are observed, intestinal perforation by PIC should be considered.

〈緒言〉

PIC は、手術や骨盤内感染症あるいは子宮内膜症などによる骨盤内の癒着が原因で生じた閉鎖腔に腹水が貯留し嚢胞を形成したものである。無症状で悪性を疑う所見がなければ、経過観察となることが多い。一方、症状が強い場合や、腫瘍との鑑別が困難な場合は、手術療法を選択するが、手術療法後の PIC 再発率は 30-50%と効率である。また、PIC 症例は、癒着が高度な状況が予想され、完全切除は困難かつ侵襲的である[1)]。

今回、卵巣癌の手術後に発生した PIC が、経過観察中に回腸と瘻孔を形成し、保存的加療のみで軽快した非常に稀な症例を経験したので報告する。

〈症例〉

56 歳、G0P0、52 歳で閉経

主訴: 下腹部腫瘤感

既往歴: 左大腿神経鞘腫 (50 歳 腫瘍切除術)

生活歴: 喫煙なし、機会飲酒

家族歴: 実父 肺癌

現病歴: 1 か月前から下腹部腫瘤感を自覚し、近医内科を受診した。骨盤内に腫瘤性病変を認めたため、当科に紹介受診となった。

現症: 身長 149.4 cm、体重 49.2 kg、血圧 125/90 mmHg、心拍数 68 回/分、臍高までの腫瘤性病変を触れる。

入院時血液検査: CEA 2.4 ng/mL、CA125 48.5 U/mL、CA19-9 6.8 U/mL

超音波断層法: 17×11 cm 大の充実成分を伴う多房性嚢胞構造あり、少量の腹水を認めた。

胸腹骨盤部 CT 検査: リンパ節腫大や遠隔転移を疑う所見なし。

骨盤部 MRI 検査: 16cm 大の多房性嚢胞性腫瘤は嚢胞壁が造影され、拡散強調で高信号の充実部分を認めた（図 1）。

内視鏡検査: 上部消化管、下部消化管ともに異常所見なし。

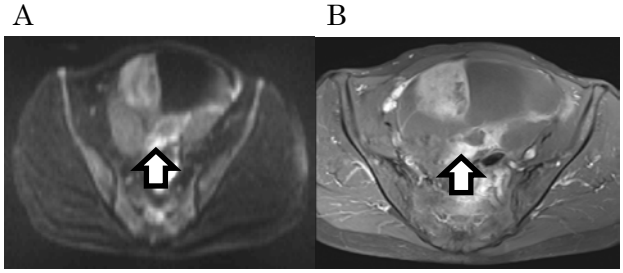



図 1 骨盤部 MRI 所見

A: 拡散強調画像、B: 造影 T1 強調画像

拡散強調で高信号を示す充実部（白矢印）を含む、16cm 大の多房性嚢胞性腫瘤を認めた。

以上の検査結果から卵巣癌の疑いで迅速病理下に手術を行い、卵巣癌と診断して子宮全摘、両側付属器切除、大網切除、骨盤・傍大動脈リンパ節郭清、虫垂切除を施行した（Complete surgery）。

病理結果: 肉眼的に右卵巣腫瘍の表面は平滑で、腫瘍被膜の破綻は認めなかった。内容液は漿液性～粘稠な多房性嚢胞性腫瘍であった（図 2）。HE 染色では、腫瘍細胞は核小体明瞭な類円形核を有し、胞体は豊富で淡明あるいは微細顆粒状であり、核が突出し、打ち釘状に配列していた。

腹水細胞診が陽性であり、以上より、clear cell carcinoma, stage IC3 と診断した。



図 2　摘出標本（右卵巣）

術後経過: 術後補助療法として、パクリタキセル（PTX）175 mg/m² とカルボプラチン（AUC = 5）による化学療法を開始した。術後に 3-4 cm 大の嚢胞性病変を認めていたが、6 コース施行後に撮影した CT 画像では、長径 11cm 大に増大していた。リンパ節腫大や転移病変は認めず、CA125 も上昇していなかったため臨床的に PIC を疑った。化学療法終了 1 年後に撮影した CT 画像では、嚢胞性病変は長径 14 cm 大と軽度増大し、嚢胞壁の肥厚も認めた （図 3A）。そのため MRI を撮影したが、充実部分や造影効果を認めなかった（図 3B） 。嚢胞穿刺も施行したが、細胞診で悪性所見は認めず、CA125 も上昇していないため、臨床的に PIC と診断した。穿刺直後、嚢胞は 6 cm 大まで縮小したが、1 週間後には 12 cm 大に再増大していた。無症状の PIC であったため、その後も外来管理で経過観察していたが、化学療法終了 1 年半後に 38-39 度の持続する発熱を認め、発熱 8 日目に当科を受診した。

＜発熱時身体所見＞

臍周囲に軽度圧痛を自覚した。

血液検査: 白血球数 6700 /μL、好中球数 5340 /μL、CRP 8.67 mg/dL

A　　B

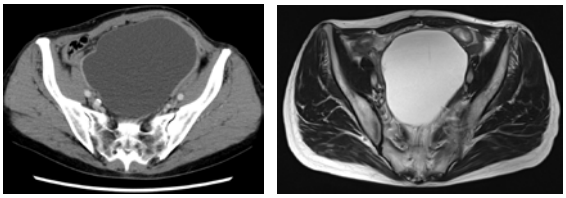


図 3　PIC の画像所見

A: CT 画像、B: T2 強調画像

長径 14 cm 大の単房性嚢胞を認めた。

腹部骨盤部 CT 検査: PIC を疑う腫瘤が、内部に air を多量に含んだ歪な形状を示す長径 10cm 大の腫瘤に変化し、その空洞性腫瘤の背側には軟部影が液面を形成していた。また、腫瘤下面と回腸の間に瘻孔が形成されており、腫瘤辺縁は壁肥厚や造影効果が目立っていた（図 4A）。

発熱後の経過: PIC と回腸との瘻孔形成による発熱が疑われたため、当院消化器外科にコンサルトし、外科医から入院の必要性について説明されたが、患者の同意を得られなかった。そのため、絶食管理（水分制限はなし）と抗菌薬内服（メトロニダゾール: MNZ 250mg 6 錠分 3、

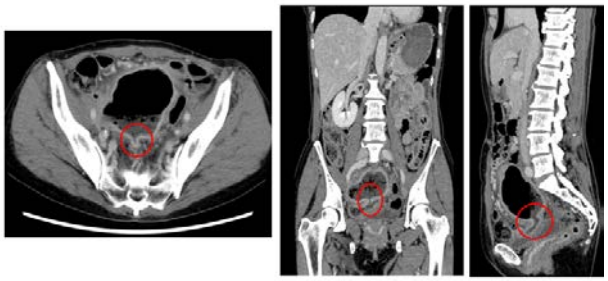
クラブラン酸/アモキシシリン：CVA/AMPC 375mg 4 錠分 4、AMPC 250mg 4 錠分 4 14 日分）で外来経過観察の方針とした。

発熱後 11 日目（抗菌薬内服 3 日目）には解熱したため食事摂取を再開した。発熱後 18 日目の受診時には炎症反応は改善した。

発熱後 18 日目の CT 検査では空洞性腫瘤は 5cm 大に縮小（図 4B）、発熱後 53 日目の CT 検査では観察困難なほどに縮小し（図 4C）、消化器外科を終診となった。発熱後の経過を治療内容、炎症マーカーの推移をグラフとして図 5 として示した。

その後新たな PIC 形成や、症状の再燃なく外来で経過観察中である。

A



B



C

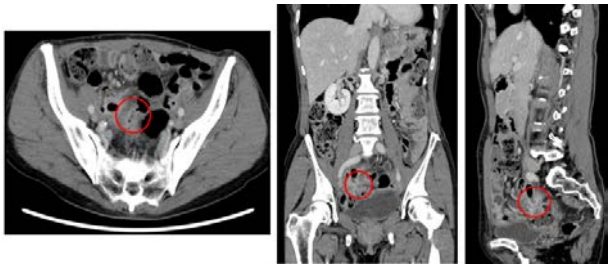


図 4 発熱後の CT 画像

A: 発熱後 8 日目。PIC が回腸と瘻孔を形成し、PIC の内部は腸内の内容物を反映した軟部影が液面を形成していた。瘻孔形成部位には炎症を反映して、壁肥厚や造影効果がみられた。

B: 発熱後 18 日目、C: 発熱後 53 日目。瘻孔を形成していた病変は消失した 。

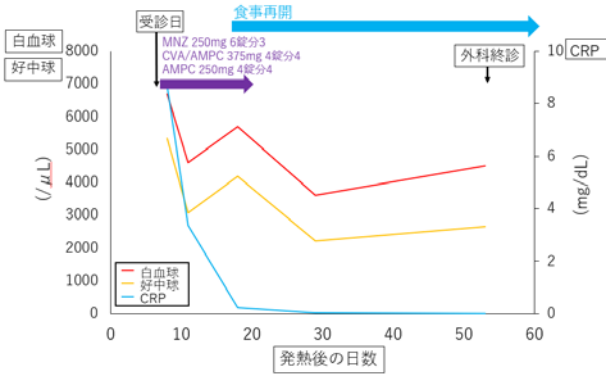



図 5 発熱後の経過

抗菌薬投与後に速やかに炎症反応は改善し、食事再開後も再燃することはなかった。

MNZ: メタロニダゾール、CVA: クラブラン酸、AMPC: アンピシシリン

〈考察〉

今回我々は、PIC が腸管と瘻孔を形成した非常に稀な症例を経験した。

医中誌で「嚢胞」「腸管穿孔」などをキーワードに 2000 年から 2020 年の期間で検索し、瘻孔を形成していた症例に絞ると合計 21 症例の報告（表 1） が該当した。また、同様のキーワードを用いて PubMed で検索すると PIC の膣瘻形成の報告 [2] と、リンパ嚢胞の腸管穿孔 [3] の 2 例のみが該当した。

嚢胞性病変は、卵巣腫瘍（成熟奇形腫、卵巣

内膜症性嚢胞、境界悪性腫瘍、卵巣癌）、嚢胞腎、膵管内粘液性腫瘍（IPMN）、膵仮性嚢胞など様々であった。嚢胞性病変が境界悪性腫瘍や癌の症例に絞ると、瘻孔形成部位には悪性所見を認めない症例も散見され、浸潤以外の機序でも瘻孔が形成されうると考えられた（表 1A）[4)-7)]。また、良性腫瘍に絞ってみると、内膜症性嚢胞の症例でも瘻孔形成部位の腸管には内膜症性病変を認めず、嚢胞性病変の存在自体が腸管と瘻孔形成の理由になりうると考えられた（表 1B）[8)]。

A

| 症例 | 年齢 | 主訴 | 性 | 病名 | 径(cm) | 瘻孔部位 | 転帰 | 瘻孔部の病理 |
|---|---|---|---|---|---|---|---|---|
| 1 | 44 | 発熱 | 女 | 卵巣粘液性境界悪性腫瘍 | 36 | 小腸 | 手術 | 良性 |
| 2 | 71 | 発熱・腹痛 | 女 | IPMN | 8 | 胃・横行結腸 | 手術 | 良性 |
| 3 | 76 | なし | 男 | IPMN | 2 | 十二指腸 | 手術 | 良性 |
| 4 | 74 | 発熱 | 男 | IPMN | 1 | 十二指腸 | 手術 | 良性 |
| 5 | 63 | 発熱・腹痛 | 男 | IPMN | 10 | 胃・横行結腸 | 手術 | 悪性 |
| 6 | 58 | 腹痛 | 女 | 卵巣癌 | 20 | S状結腸 | 手術 | 悪性 |
| 7 | 83 | 発熱・腹痛 | 女 | 卵巣癌 | 10 | 直腸 | 手術 | 悪性 |
| 8 | 60 | 発熱・腹痛 | 女 | 卵巣癌 | 10 | S状結腸・膀胱 | 手術 | 悪性 |
| 9 | 68 | 発熱・腹痛 | 女 | 卵巣癌 | 20 | S状結腸 | 手術 | 悪性 |

IPMN:膵管内粘液性腫瘍

B

| 症例 | 年齢 | 主訴 | 性 | 病名 | 径(cm) | 瘻孔部位 | 転帰 | 瘻孔部の病理 |
|---|---|---|---|---|---|---|---|---|
| 1 | 43 | 下血・腹痛 | 男 | 膵仮性嚢胞内出血 | 1.5 | 下行結腸 | 塞栓 | - |
| 2 | 53 | 下血・貧血 | 男 | 膵仮性嚢胞内出血 | 4 | 十二指腸 | 塞栓 | - |
| 3 | 58 | 下血・失神 | 男 | 膵仮性嚢胞内出血 | 11 | 十二指腸 | 手術 | 良性 |
| 4 | 27 | 吐血 | 男 | 膵仮性嚢胞内出血 | 5 | 十二指腸 | 手術 | 良性 |
| 5 | 52 | 下血 | 男 | 膵仮性嚢胞内出血 | 4 | 横行結腸 | 手術 | 良性 |
| 6 | 66 | 発熱・腹痛 | 男 | 膵仮性嚢胞 | 20 | 十二指腸 | 手術 | - |
| 7 | 60 | 血尿・腹痛 | 女 | 多発性嚢胞腎 | 7.5 | 下行結腸 | 手術 | 良性 |
| 8 | 48 | 血便 | 女 | 卵巣成熟嚢胞性奇形腫 | 2.2 | 直腸 | 手術 | 良性 |
| 9 | 85 | 発熱・腹痛 | 女 | 卵巣成熟嚢胞性奇形腫 | 13 | S状結腸 | 手術 | 良性 |
| 10 | 40 | 発熱・腹痛 | 女 | 卵巣成熟嚢胞性奇形腫 | 5 | 直腸 | 手術 | 良性 |
| 11 | 84 | 腹痛 | 女 | 卵巣成熟嚢胞性奇形腫 | 25 | 直腸 | 手術 | 良性 |
| 12 | 41 | 血便・腹痛 | 女 | 卵巣内膜症性嚢胞 | 8.5 | S状結腸 | 手術 | 良性 |
| | | | | | | | | 内膜症なし |

表 1　医中誌（2000-2020 年）の検索結果
A: 境界悪性・悪性腫瘍と腸管の瘻孔形成、B: 良性腫瘍と腸管の瘻孔形成

これら腸管との瘻孔の原因としては、①腫瘍と臓器間の炎症性癒着による壁の菲薄化、②腫瘍の発育増大による隣接臓器への圧迫・血流障害、③腫瘍の悪性化による直接浸潤、④腫瘍内産物（胃腺・膵臓組織による消化液産生）による融解、⑤分娩や外傷などの機械的要因、⑥腸管壁の脆弱性・菲薄化（低栄養など）などが挙げられる[9)10)]。本症例と照らし合わせてみると、④⑤⑥に関しては該当せず、③に関しては CT、MRI、細胞診、腫瘍マーカーの推移からは否定的であった。①に関しては卵巣癌術後であり腹腔内の癒着は予想され、②に関しては PIC が最大で 14cm 大まで増大したことから、①②がその原因と考えられた。

PIC の確定診断は一般的に組織学的検査によるものとされるが、病理学的診断の一助として嚢胞の穿刺細胞診で肥大した中皮細胞を同定すること、免疫組織学的にケラチンやビメンチンが陽性であることが診断に有効という報告もある[11)12)]。一方で無症状のことも多く、悪性を疑わない場合には、臨床的に PIC と診断されることが多い[1)13)]。本症例でも穿刺により中皮細胞を検出しなかったが、再発を疑う所見が乏しかったため、臨床的に PIC として外来管理した。

PIC の治療法に関しては、卵巣が残存しているような場合は低用量エストロゲン・プロゲスチン配合薬（LEP）や GnRH アゴニスト、ダナゾールが有効である[1)11)]という報告や、アルコール硬化療法が有効である[14)]という報告が散見される。しかし一方で、アルコール硬化療法が PIC の癌化に関与する可能性を指摘している論文も存在する[2)]ので、適応には注意が必要である。

本症例は、14cm 大まで増大した PIC が回腸と瘻孔を形成したことによって、①内容液が腸管内に漏出したことで縮小した、または②腹腔内に内溶液が漏出したことで縮小したと考えられた。一般的に大腸穿孔を認めた場合の死亡率

は、早期治療では 14%、24-48 時間の治療では 33%、48 時間以上経過した場合は 50%、と時間経過とともに死亡率が著明に増加することが知られている [10]。嚢胞性病変は大腸と穿孔することもあり（表 1)、経過観察中に発熱や腹痛などの症状を認めた場合は、PIC による腸管穿孔を鑑別の一つとして考慮して迅速な対応が必要である。本症例では小腸穿孔を生じたが、患者に同意が得られずに入院管理とならなかった。消化管穿孔は死亡に至る可能性もあるため、緊急手術に対応できるようにしなければならない。今回、保存的管理が可能であったことから小腸と大腸では予後がやや異なるのかもしれない。

## 結論

PIC が存在する場合、経過観察中に発熱や腹痛などの症状を認めた時は、PIC による腸管穿孔を鑑別の一つとして考慮する必要がある。

“本論文の内容は令和 3 年度静岡産科婦人科学会春季学術集会で発表した”

〈参考文献〉

1. 花谷茉谷, 長船綾子,梅津朋和, 他. 術後再発した腹膜偽嚢胞に対して LEP 療法が有効であった 2 症例. 東海産婦誌 2019; 56: 207-213

2. Wolf J, Jackson A, Herzog T, et al. A case of a unique presentation of a primary vaginal endometrioid adenocarcinoma arising in the setting of a recurrent peritoneal inclusion cyst fistulized to the vagina. Gynecol Oncol Rep 2020; 33: 100585

3. Fatiou SK, Tserkezoglou AJ, Steinhauer G, et al. Pelvic lymphocysts after radical hysterectomy and lymphadenectomy. Eur J Gynaecol Oncol 1994; 15: 449-454

4. 柏原優花, 真川祥一, 池田智明, 他. 小腸穿孔を合併した卵巣粘液性境界悪性腫瘍の 1 例. 東海産婦誌 2019; 56: 95-99

5. 寒川玲, 中村慶, 島田啓司, 他. 急速に増悪し胃・横行結腸に穿破した膵管内乳頭粘液性腫瘍の 1 例. 癌と化学療法 2018; 45: 569-571

6. 渡邉幸博, 岡本光順, 清水道生, 他. 長期経過観察中に十二指腸穿破を認めた混合型 intraductal papillary mucinous neoplasm の 1 切除例. 日本消化器外科学会雑誌 2015; 48: 769-775

7. 野島広之, 清水宏明, 宮崎勝, 他. 十二指腸へ穿破した非浸潤型 intraductal papillary mucinous carcinoma (IPMN) の 1 切除例. 癌と化学療法 2010; 37: 2376-2378

8. 安井啓晃, 服部諭美, 佐竹立成, 他. 子宮内膜症性卵巣嚢胞が S 状結腸に穿孔した 1 例. 東海産婦誌 2013; 50: 245-248

9. 石川陽子, 山本暖, 早瀬良二, 他. 直腸に穿孔した卵巣成熟嚢胞性奇形腫の 1 例. 現代産婦人科 2016; 65: 69-73

10. 小竹優範, 山本大輔, 品川誠, 他. 巨大な右卵巣奇形腫の圧迫・壊死に伴う腸管穿孔の 1 例. 手術. 名川弘一編集 東京: 金原出版, 2009; 63: 413-416

11. 武内享介, 望月眞人, 古結一郎, 他. Multiocular Peritoneal inclusion Cyst の 2 例. 日本臨床細胞学会雑誌 1997; 36: 244-248

12. 武内享介, 望月眞人, 古結一郎, 他. Multiocular Peritoneal inclusion Cyst の 1 例 -その治療法に関する考察-. 臨産婦 1996; 50: 1615-1618

13. 藤本英夫, 中西慶喜, 中尾行憲. Pill 療法を

試みた子宮全摘出後の附属器貯留嚢腫の 1 例. 産婦中四会誌 1999; 47: 158-162
14. 関根仁樹, 武内務, 林瑞成, 他. アルコール硬化療法が奏功した peritoneal inclusion cyst の 1 例. 東京産婦会誌 2012; 61: 75-78