

診 療

子宮広間膜裂孔を貫通した子宮付属器茎捻転の1例

旭中央病院産婦人科

宇田川秀雄 須賀田元彦 遠藤 誠一 石元 志保
寺内 公一 塚原 優己 押尾 好浩

Torsion of Uterine Adnexa through a Defect in the Broad Ligament :
A Case Report

Hideo UDAGAWA, Motohiko SUGATA, Seiichi ENDO, Shiho ISHIMOTO,
Masakazu TERAUCHI, Yuuki TSUKAHARA and Yoshihiro OSHIO
Department of Obstetrics and Gynecology, Asahi General Hospital, Chiba

Abstract An unusual case of torsion of uterine adnexa through a defect in the broad ligament occurring in a 33-year-old woman is described. Her past history includes two cesarean sections. She presented with right lower abdominal and back pain, nausea, and later, fever, leukocytosis, high serum CRP and a paraumbilical mass lesion. Emergency laparotomy revealed that the right adnexa rotated twice anteriorly, and was drawn up to the level of the umbilicus. This situation is extremely rare, though intestinal hernias are sometimes reported. Although the cause of the defects in the broad ligament remains unclear, some gynecological factors may be responsible.

Key words: Torsion of uterine adnexa • Defect in the broad ligament

緒 言

子宮付属器茎捻転は稀な疾患ではないが、通常は茎部がひとつの軸となり、それと直角方向に捻転する。今回、子宮広間膜異常裂孔の中をくぐり、子宮側と骨盤側の双方を軸として前方に2回転捻転し、診断が困難であった例を経験した。子宮広間膜裂孔の臨床的意味も含めて報告する。

症 例

33歳2回経妊で、1990年初産における骨盤位により、帝王切開術を受け1993年反復帝王切開術を受けた既往がある。その他に特記すべき既往歴家族歴はない。月経周期は28日型整で、最終月経は1997年4月18日から6日間であった。

1997年5月8日夕方から右腰部痛、9日から下腹部の鈍痛が出現し、間歇的に持続していた。排尿便通は正常だった。10日の午前1時半頃に疼痛が増強したため来院した。バイタルサインは正常、体温36.3°Cで、前屈みの姿勢によりやや緩和される下腹部全体の持続的鈍痛があり嘔気嘔吐を伴っ

ていた。圧痛は右下腹部が強かったが腹膜刺激症状は明らかでなく、聴診で腸音は正常だった。内診では腫瘤を認めず、子宮と左右付属器に軽度の圧痛があったが左右差は認めなかった。超音波検査では帝王切開歴による子宮拳上がみられ、右卵巣は長径約5cmと軽度腫大、左卵巣は明らかでなかった。腹腔内に少量の液体貯留があり、虫垂腫大や水腎症は認めなかった。腹部X線単純撮影は施行していない。血液検査ではRBC 429万/ μ l, Hb 13.3g/dl, WBC 9,900/ μ l, CRP 0.3mg/dl以下、血液生化学的検査と尿沈渣所見では異常を認めず、尿妊娠反応も陰性であった。入院後下腹部痛は軽減したが腰背部痛、嘔気が軽度持続した。再度の尿検査で赤血球15~17/HPFであり、明らかな水腎症はみられなかったが尿管結石を強く疑い、自然排石を期待し数日経過観察することにした。その後自覚症状は比較的軽度であったが12、13日に38°C台の発熱があり、触診で臍部の右上に圧痛を伴う鶏卵大の腫瘤を認めた。腹部超音波検

査、腹部CT検査で径49×59mmで不均一性の腫瘤がみられ(Fig. 1)、血液検査ではWBC 13,100/ μ l, CRP 14.7mg/dlであった。一方骨盤内は自発痛、圧痛とも軽度で超音波検査でも腫瘤や液体貯留を認めなかった。以上から腸管、腸間膜の血腫、又は膿瘍と診断し、緊急手術とした。

開腹すると200mlの淡血性腹水があり、子宮は下腹部壁側腹膜に強く癒着していた。臍右上部に大網、小腸、腸間膜の癒着に囲まれた、血腫を含む腫瘤が分離できた。当初消化管病変を考えたが、腫瘤茎を辿ると足方に長く伸び、二つに分かれて内側は子宮、外側は右骨盤壁につながり、各々の茎に捻転が認められた。すなわち広間膜後葉に約3×4cmの辺縁平滑な裂孔があり、右の子宮付属器がその裂孔を貫通して前方に2回転したものであった(Fig. 2, 3)。血腫を一部除去しつつ捻転を解除し、壊死状態となっていた右付属器を切除した。捻転した骨盤漏斗靱帯は狭小化して細長く伸びており、尿管や近傍組織の巻き込みや新鮮血流はないと思われたため、後腹膜側の処理は行わなかった。なお左付属器は正常で術後経過は良好であった。腫瘤は血腫を含め30gで、病理組織学的には出血性壊死所見がみられたのみであった。

考 察

子宮広間膜には裂孔が形成されることがあり、臨床との関わりとしては、腸管がヘルニア嵌頓を起こしたときに診断され、稀なものとして後述のように報告されている。一方、卵巣や子宮付属器

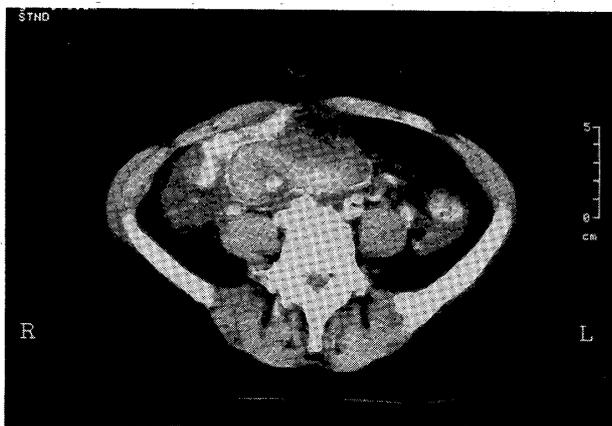


Fig. 1 Preoperative enhanced CT scan showing a paraumbilical tumor.

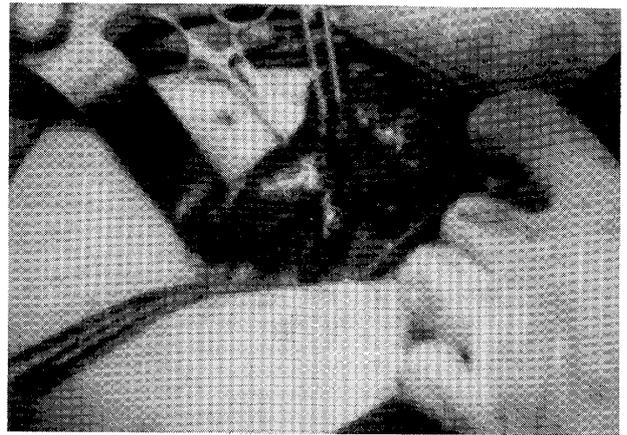


Fig. 2 Torsion of right adnexa through a defect of the broad ligament resulting a congestion.

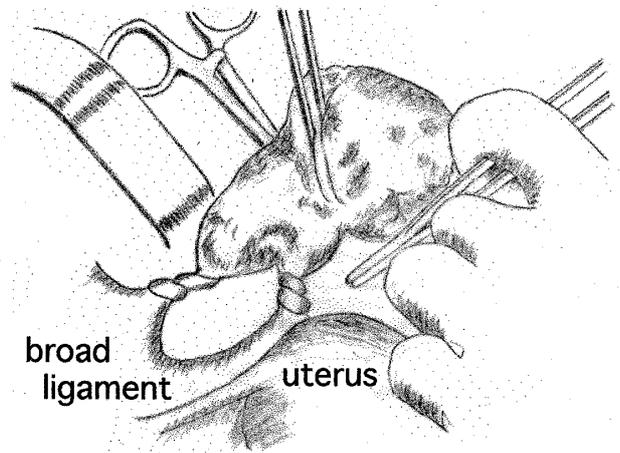


Fig. 3 Schematized Fig. 2.

が貫通したものとしては、1934年の Masson et al. の例¹⁾と1977年の Kyösola の例²⁾に辿り得たのみであった。この2例はいずれも急性の右下腹部痛の症例である。前者は26歳で、Fig. 4のように右卵巣と卵管膨大部が子宮広間膜後葉から両葉間に入り込んでいたという。後者は32歳で、右卵管間膜に直径約3cm、辺縁平滑な丸い裂孔があり、右卵巣が貫通、捻転して壊死が始まっていたと記載されている。したがって形態としては我々の例も含めた3例各々が異なることになる。

以下、子宮広間膜裂孔の頻度、形状、成因について腸管ヘルニアも含めて考察する。広間膜裂孔腸管ヘルニアの報告は、1861年に Quain が死亡剖検例で報告したのが最初とされ¹⁾、臨床的治療例としては1918年 Fagge³⁾による報告が最初とされ

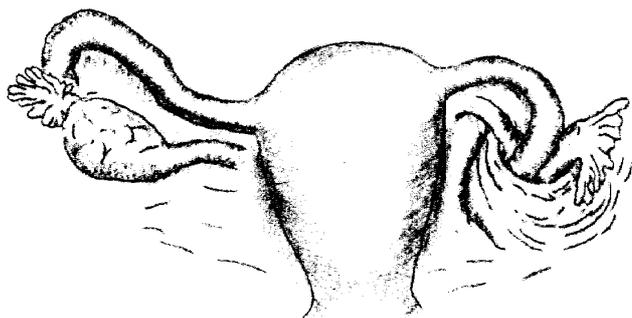


Fig. 4 A scheme showing a case of Masson et al. (modified from Ref. 1).

ている。報告例数として1948年に Baron は45例⁴⁾、1986年 Suzuki et al. は62例⁵⁾としている。国内報告例は1977年の柳沢の例⁶⁾が最初とされ、佐々木らによると1995年までに20例である⁷⁾。入手した近年の国内例20件をみると産婦人科からは3件に過ぎず^{8)~10)}、16件が外科、1件は放射線科からであった。子宮広間膜の異常に基づく疾患でありながら、産婦人科医の関わる機会が少ないことを反映していると思われる。

広間膜裂孔の位置について Cilley et al. は、広間膜後葉から円靭帯尾側にまで達する type 1、円靭帯頭方に出る type 2、円靭帯の直下のみを貫通する type 3に分類した¹¹⁾。Fafet et al. は卵管間膜を貫通するものを type 4として加えている¹²⁾ (Fig. 5)。

また Hunt は腸管が広間膜の両葉を貫通する fenestrae type、一葉のみ通って先進部が両葉間にとどまる pouch type の2種類に大別した¹³⁾。pouch type は前葉のみ通るものと後葉のみ通るものがある。Cilley et al. は各々を complete type と single layer type と名付け、それに加え両葉をヘルニア囊とする真性ヘルニアの稀な形を第3のものとして挙げている¹¹⁾。Cilley et al. が47例を分類した結果では、31例(66%)が type 1の complete type で、大半を占めていた。本例は type 2の complete type に相当する稀な形(Cilley et al. の分類で3例、6%)である。ちなみに子宮付属器の上記2例についてあてはめると、Masson et al. の例¹⁾は type 2の single layer type、Kyösola の例²⁾は type 4の complete type に相当する。

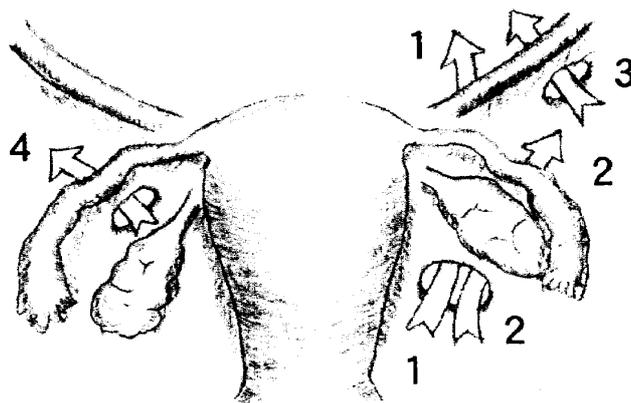


Fig. 5 Four types of defects of the broad ligament (modified from Ref. 12).

左右差はないとされており、佐々木らによる本邦20例の集計でも左は10例、右は9例、両側が1例であった⁷⁾。

裂孔の成因は、広間膜における妊娠中の伸展による脆弱化、分娩時外力の影響、手術操作の直接的影響、炎症による脆弱化などから生じる後天性と、先天性とが考えられている。当初は Webster-Baldy の手術(広間膜を通して円靭帯を子宮背面に縫合固定する子宮後屈を治療するための手術)を受けた例が多いとされ、1948年の Baron によればそれまでの45例中17例がその手術を受けていたという⁴⁾。また平均年齢が40代であること、経産婦が多いことから後天性、特に妊娠出産との関連が考えられている。しかし未産婦の例や左右対称性の例もあり、先天性の因子として発生学的に形成された広間膜嚢胞の破綻が関わることも示唆されている¹⁴⁾。個々の症例の原因は必ずしも特定し難く、複数の要因が関わることもあり得ると思われる。本例は裂孔内縁がほぼ楕円状平滑であった。一般に裂孔形成から時間的経過が長いほど円形平滑に近づくとと思われるため、妊娠分娩以前の形成も考えられた。しかし2回目の帝王切開の時に右付属器周辺が癒着していた事実があり、癒着形成時の影響や、剝離操作、術中の付属器触診との関連も否定できない。帝王切開時に子宮広間膜形状の確認はしておらず、詳細は不明である。

通常の付属器茎捻転の機序は、卵巣腫瘍の不均衡性、身体軸の回転などが影響するとされているが¹⁵⁾、最も影響するのは接触する腸管の蠕動と思

われる。本例では帝王切開後の子宮腹壁癒着のために付属器も頭側寄りにあり、通常以上に腸管の影響を受けやすかった可能性がある。

腫瘍の大きさは長径約6cm, 約30gにとどまったが、それでも裂孔の大きさを上回っていた。腫瘍の大半が二次的と思われる血腫であり、正常大に近いものが徐々に捻転し、通常の茎捻転と同様、ある時点から循環障害を来し鬱血による血腫を形成、さらに大網、腸間膜による癒着、頭側への巻き込みを併発しつつ症状を示してきたものと思われる。

卵巣実質部分は壊死が強く病理組織学的には hemorrhagic necrosis のみだった。時期的には黄体期であり、黄体嚢胞を伴った軽度腫大が契機であった可能性が考えられるが、組織学的には明らかでなかった。

臨床症状として、当初の強い腹痛、嘔気嘔吐の後に痛みの軽減があり、その後の組織壊死による発熱やCRP上昇などがみられたが、これらは通常の子宮付属器茎捻転に類似と考えられる。骨盤内の症状は比較的乏しかった形態的に頭側への子宮付属器の可動性が大きく、捻転による影響が少なかったためかと思われる。むしろ骨盤漏斗靱帯の捻転のためか尿管結石の症状に類似した側腰部と側腹部の痛みが強かった。

子宮広間膜の腸管ヘルニアに対しては近年CT等により術前診断できた例が増加しているが⁵⁾¹⁶⁾¹⁷⁾、これらは腸管が比較的明瞭な所見を示すためであろう。子宮付属器についての正確な術前診断は困難と思われる。開腹して診断がつけば治療は比較的容易である。

おわりに

本疾患のような卵巣や子宮付属器が広間膜を貫通して生じた疾患は極めて稀であるが¹⁾²⁾、子宮広間膜裂孔の腸管ヘルニアについては多数報告がある^{3)~14)16)17)}。前述のように子宮広間膜の異常に基づく疾患でありながら産婦人科医が関わる機会は少ないと思われるが、原因として手術操作ほか産婦人科的事柄の密接な関わりが考えられ、産婦人科の臨床上念頭に置くべきものと思われる。

文 献

1. Masson JC, Atkinson W, Minn R. Hernias into the broad ligament and remarks on the other abdominal hernias. *Am J Obstet Gynecol* 1934; 28: 731-738
2. Kyösola K. Simultaneous occurrence of ovarian torsion and gangrenous strangulation through a congenital opening in the mesosalpinx. *Annales Chirurgiae et Gynaecol* 1977; 66: 290-291
3. Fagge CH. Two cases of strangulated retroperitoneal hernia into pouches in the broad ligament. *Brit J Surg* 1918; 5: 694-696
4. Baron A. Defect in the broad ligament and its association with intestinal strangulation. *Br J Surg* 1948; 36: 91-94
5. Suzuki M, Takashima T, Funaki H, Uogoshi M, Isobe T, Kanno S, Kuwahara M, Ushitani K, Fuchuh K. Radiologic imaging of herniation of the small bowel through a defect in the broad ligament. *Gastrointest Radiol* 1986; 11: 102-104
6. 柳沢文憲. 子宮広間膜に発生した内ヘルニアの1例. *外科* 1977; 39: 1058-1060
7. 佐々木秀文, 春日井貴雄, 小林 学, 堀田哲夫. 妊娠に合併した子宮広間膜異常裂孔ヘルニア (pouch type) の1例. *日臨外医会誌* 1995; 56: 1946-1950
8. 長谷川瑞代子, 佐藤公生, 葛西 亨, 樋口誠一. 子宮広間膜裂孔に生じた内ヘルニアの1例. *臨婦産* 1987; 41: 779-781
9. 北山俊也, 八木重尾, 上田博雄. 卵巣腫瘍の茎捻転との鑑別診断に苦慮した子宮広間膜裂孔ヘルニアの1例. *産婦の進歩* 1993; 45: 255-257
10. Ishikawa H, Terahara M, Kigawa J, Terakawa N. Strangulated herniation through a defect of the broad ligament of the Uterus. *Gynecol Obstet Invest* 1993; 35: 187-189
11. Cilley R, Poterack K, Lemmer J, Dafoe D. Defects of the broad ligament of the uterus. *Am J Gastroenterol* 1986; 81: 389-391
12. Fafet P, Souiri M, Said HO, Mattei M, Godlewski G. Hernie interne de l'intestin grele a travers une breche du ligament large, a propos d'une observation. *Journal de Chirurgie* 1995; 132: 314-317
13. Hunt AB. Fenestrae and pouches in the broad ligament as an actual and potential cause of strangulated intra-abdominal hernia. *Surg Gynecol Obstet* 1934; 85: 906-913
14. Simstein NL. Internal herniation through a defect in the broad ligament. *Am Surg* 1987; 53: 258-259
15. 小林 隆. 現代産科婦人科学大系. 婦人科症候学 I 東京: 中山書店, 1973; 226-227
16. 田伏久之, 南 卓男, 池淵雅成, 福島文雄. 子宮広間膜の異常裂孔による内ヘルニアの1例. *救急医学* 1993; 17: 735-738
17. 桐山昌伸, 全並秀司, 加藤文博. 子宮広間膜異常裂孔ヘルニア (pouch type) の1例. *日消外会誌* 1994; 27: 2481-2485

(No.7952 平10・5・15受付)