

## 診 療

## 直腸瘻を形成した良性卵巣成熟嚢胞奇形腫の1例

産業医科大学産婦人科学教室

福田 純子 土岐 尚之 杉原耕一郎  
吉田 耕治 柏村 正道

## Benign Cystic Teratoma of the Ovary with Rupture into the Rectum

Junko FUKUDA, Naoyuki TOKI, Koichiro SUGIHARA, Koji YOSHIDA and Masamichi KASHIMURA

*Department of Obstetrics and Gynecology, University of Occupational and  
Environmental Health, School of Medicine, Fukuoka*

**Abstract** A thirty-four-year-old housewife with benign cystic teratoma of the ovary ruptured into the rectum after delivery is reported. Such cases have rarely been mentioned in the literatures. CT and MRI disclosed the transcommunication between the left ovarian tumor and the rectum reported here for the first time. The left ovarian tumor was resected, and the fistula was closed with a satisfactory postoperative course. The fistula may have originated in the inflammatory change due to rupture of the ovarian tumor caused by compression during labor.

**Key words** : Benign cystic teratoma · Ruptured into the rectum

## はじめに

一般に、婦人科の悪性腫瘍の末期には腫瘍と直腸や結腸の間の瘻孔形成は珍しくない<sup>1)</sup>。しかしながら、良性卵巣腫瘍と腸管との間の瘻孔形成は極めて稀であり、成熟嚢胞奇形腫・直腸瘻の報告が散見されるに過ぎない<sup>2)</sup>。今回我々は、分娩時の物理的な圧迫が関与したと考えられた成熟嚢胞奇形腫(皮様嚢腫)による直腸瘻を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

## 症 例

患者：M.C.；34歳，主婦。

主訴：下腹部の絞扼痛，肛門よりの粘液性分泌物漏出，排尿困難。

家族歴：父親が腎癌。

月経歴：初経；13歳，以後28日周期，順調。

妊娠・分娩歴；29歳経腔分娩，男児，3,400g。32歳不全流産(週数不明)。34歳遷延分娩にて吸引分娩。女児，3,456g。

現病歴：平成5年第1子妊娠中に卵巣の腫大

(皮様嚢腫の疑い)を指摘されていたが経過観察されていた。平成10年5月，第2子を吸引分娩で出産，出産後11日目より下腹部の絞扼痛が出現。子宮内膜炎の診断で，抗生物質が投与された。同時に肛門から粘液の漏出，排尿困難があったが直腸鏡上異常は認められなかった。平成10年6月，当科を紹介受診。内診及び超音波検査で左付属器領域に6cm大の嚢胞性腫瘤を認めた。CT上内部にガス像があり，卵巣腫瘍直腸瘻が疑われた。手術をすすめたが自覚症状が消失し，かつ本人が第2児の離乳後の手術を希望したため外来で定期的に経過観察していた。平成10年8月頃より再度肛門からの血性の粘液や毛髪を排出を認めるようになったため，平成10年10月卵巣腫瘍・直腸瘻の疑いで精査加療目的のため当科入院。

入院時所見：身長158cm，体重60kg，内診所見では子宮は前傾前屈，鶏卵大であり，左付属器には直径6~7cm大の嚢胞性腫瘤が触知され，可動性は不良であった。直腸診では左付属器腫瘤に接



図1 MRI検査で子宮の左背側に6.5×5×8.5cmの嚢胞性腫瘍を認めた。腫瘍内部にT1強調画像でやや高信号域を呈する部分がみられた。壁はやや厚く、明らかな充実性部分はみられなかった。また直腸とFistulaを形成し腫瘍内部にはガスもみられた。



図2 注腸造影検査で直腸Ra部位の前・左側壁より管外への造影剤の漏出を認めた。

する部分が表面不整で圧痛が認められた。経腹超音波所見ではhyper~hypoechoic partが混じる径8cm大の腫瘍を左付属器領域に認めた。血液・生化学所見では、WBC 6,000/mm<sup>3</sup>, Hb 11.6g/dl, CRP 0.2mg/dlであり、その他にも異常所見を認めなかった。腫瘍マーカー検査ではいずれも正常値であった。腎・膀胱部単純X線写真では歯牙はみられなかった。MRI検査では子宮の左背側に6.5×5×8.5cmの嚢胞性腫瘍を認めた。腫瘍内部にT1強調画像でやや高信号域を呈する部分がみられた。壁はやや厚く、明らかな充実性部分はみ

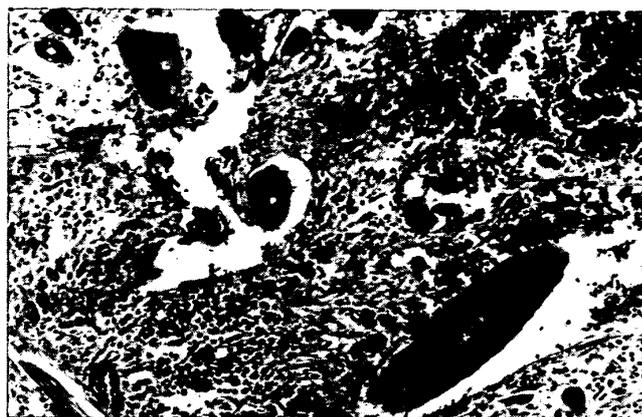


図3 摘出標本の病理組織像では嚢胞壁には毛嚢を認め、異物巨細胞を含む炎症細胞浸潤を著明に認め、成熟嚢胞奇形腫と診断されたが悪性の所見は認められなかった(HE, ×50)。

られなかった。また直腸とfistulaを形成し腫瘍内部にはガスもみられた(図1)。注腸造影検査では直腸Ra部位の前・左側壁より管外への造影剤の漏出を認めた(図2)。直腸ファイバースコープでは肛門より口側10cmの直腸左壁にdimpleを伴う隆起がありdimple内部に白色の物質がみられ左卵巣から交通するfistulaであると思われた。

入院後経過：平成10年10月開腹術施行。開腹所見では左卵巣腫瘍と後腹膜、子宮、直腸が強固に癒着して、卵巣腫瘍は上方3分の1のみ観察可能であった。癒着を剝離して8×5×3cm大の左卵巣を摘出した際に直腸左方との癒着と瘻孔の形成が明らかであった。右卵巣は正常であった。骨盤腹膜は発赤・肥厚等の骨盤腹膜炎の所見が認められた。

嚢胞内部に毛嚢を多数認め、黄白色の泥状物質が混在し、糞臭を伴っていた。

手術時、腫瘍は直腸とは鈍的に剝離可能であったが、瘻孔形成部の直腸壁部分にも毛髪球が食い込んで約5cmにわたり炎症性の直腸の肥厚が認められた。欠損した直腸壁を吸収糸で2層に縫合し瘻孔を閉鎖し、Douglas窩にドレーンを設置して閉腹、手術終了した。摘出標本の病理組織像では嚢胞壁には毛嚢を認め、異物巨細胞を含む炎症細胞浸潤を著明に認め、成熟嚢胞奇形腫と診断された(図3)。術後経過は順調で術後13日目に退院した。

表1 直腸瘻を形成した良性卵巣嚢胞奇形腫

著者	年	年齢	症状	理学所見	画像所見	手術
① Gardner	1908	31	腹痛 肛門から毛髪の出	PS: 毛で覆われた ポリープ様腫瘍		瘻孔縫縮
② Thomas and Exley	1930	45	腹痛, 便秘 排尿困難, 体重減少	付属器腫瘍	KUB: 骨盤内石灰化陰影	不明
③ Carter et al.	1939	36	排尿困難, 腹痛 尿道から便とガス	骨盤内腫瘍	KUB: 石灰化陰影 BE: S状結腸壁からの瘻孔	瘻孔縫縮
④ Lowe et al.	1947	43	発熱, 腹痛, 膣から便, ガス, 毛髪の出	PS: 直腸へ突出する 歯牙 骨盤内腫瘍	BE: 腫瘍による狭窄	瘻孔縫縮 人工肛門造設術
⑤ Figiel and Figiel	1966	57	腹痛, 発熱	下腹部腫瘍	BE: 結腸よりの Ba 流出	瘻孔縫縮
⑥ Dandia	1967	9	排尿困難	PS: ポリープ様 直腸腫瘍		楔状切除 人工肛門造設術
⑦ Sasaki et al.	1979	48	不明	PS: 歯牙と毛を伴う 腫瘍	KUB: 石灰化	楔状切除 縫縮
⑧ Landmann et al.	1988	22	直腸からの出血	PS: 直腸ポリープ	BE: 直腸ポリープ	切除, 縫合
⑨ Fukuda et al.	2002	34	腹痛, 発熱 排尿困難	PS: 白苔を伴う ポリープ 骨盤内腫瘍	BE: 結腸よりの Ba 流出 MRI: 瘻孔所見あり	瘻孔縫縮

BE: Barium enema KUB: kidney, ureter & bladder UST: ultrasonography PS: proctoscope Ba: barium

## 考 察

良性の卵巣腫瘍の合併症として多いのは茎捻転で、腫瘍破裂は比較的稀で、その頻度は約2%程度といわれている<sup>3)</sup>。一般に成熟嚢胞奇形腫(皮様嚢腫)は嚢胞壁が厚いため、破裂しにくいとされているが、皮様嚢腫が破裂する原因として、1) 炎症性、2) 腫瘍の悪性変化、3) 分娩などの外的な圧力、4) 循環障害などが挙げられている<sup>4)</sup>。今回の症例では第2子分娩後に起こった腹部の絞扼痛、その後引き続いて起こった肛門からの粘液漏出というエピソードより第2子分娩が契機となったと思われる。圧迫により腫瘍が破裂し、併発した骨盤腹膜炎が直腸壁まで波及し、瘻孔を形成したと考えられた。卵巣腫瘍の破裂形式は腹腔内への破裂と本例のような管腔臓器への破裂の2種があり、後者は非常に稀であり、かつ報告例はすべて成熟嚢胞奇形腫であった。表1に本症を含めて過去に報告された成熟嚢胞奇形腫が結腸・直腸に瘻孔形成した9例をまとめた<sup>2)4)</sup>。初発症状としては腹痛が最も多く、約60%にみられた。次いで排尿障害・敗血症様症状(44%)、発熱(33%)、肛門からの出血や粘液の漏出(22%)などが報告されている。

9例の平均年齢は36.1歳であり、良性の成熟嚢胞奇形腫の好発年齢であり、また性成熟期におい

ては妊娠出産による腫瘍の圧迫も一つの原因となっていると考えられる。

診断は直腸から毛髪が出てくるといった所見があればほぼ確実であるが9例中2例にしか認めていない。今回は特に骨盤内腫瘍の精査の一環として先行検査したCTでガス像が認められ、直腸瘻を強く疑った。さらに入院後MRIでも直腸瘻の存在が証明され、最終的には直腸鏡でも確認できた。直腸鏡ではポリープ様の所見がみられ、毛髪や歯牙が認められる場合は診断が容易である<sup>4)</sup>。また注腸造影で瘻孔が認められれば腸瘻の存在が示唆されるが、実際には腫瘍による圧迫や、狭窄の所見しか認められないことも多く、9例中注腸造影で瘻孔が明らかとなった症例は3例のみである。CTやMRI上で卵巣腫瘍直腸瘻を記載した報告例は過去の報告の中にはなかったが、CTやMRIが一般化する1970年代以前の報告が多いためと考えられた。

手術方法としては卵巣腫瘍の摘出と、腸管の損傷部の修復が必要である。腸管の循環障害や、炎症のために壊死を起こしている部分が存在する場合は腸管の切除・端々吻合術も必要とされる。9例中、5例は瘻孔を縫合して閉鎖し手術終了しているが、結腸・直腸の手術を要した症例も3例ほどみられる。直腸瘻を形成した良性卵巣腫瘍の発

生例の左右差については9例中、左側発生が3例、右側発生が2例、両側発生が1例、不明例が3例であった。成熟嚢胞奇形腫は若年者においては最も頻度の高い良性卵巢腫瘍であるが、妊娠中に発見された場合、稀ではあるが今回の報告のような破裂による直腸瘻形成という合併症が起こりうることを念頭において管理することが必要である。

#### 結 語

今回我々は成熟嚢胞奇形腫・直腸瘻をきたした稀な1症例を経験した。今回の瘻孔形成の原因としては、第2児の分娩時に産道から卵巢腫瘍を圧迫・破裂させ、引き続いて起きた骨盤腹膜炎が原因となって直腸との瘻孔を形成したと考えられた。

#### 文 献

1. Skipper D, Moran B, Dormandy JA, Hald RJ. Two cases of colon-ovarian cystofistula. *Int J Colorect Dis* 1995; 10: 70—72
2. Landmann DD, Lewis RW. Benign cystic ovarian teratoma with colorectal involvement, report of a case and review of literature. *Dis Colon Rectum* 1988; 31: 808—813
3. Peterson WF, Prevost EC, Edmunds FT, Hundley JM, Morris FR. Benign cystic teratomas of the ovary: a clinico-statistical study of 1,007 cases with a review of the literature. *Am J Obstet Gynecol* 1955; 70: 368—382
4. Sasaki H, Nagasako K, Harada M, Kobayashi S, Uetake K. Benign cystic teratoma of the ovary with rupture into the rectum, report of a unique rectal tumor. *Dis Colon Rectum* 1979; 22: 248—251  
(No. 8251 平 14・4・24 受付, 平 14・9・2 採用)