

16歳の非交通性副角子宮を伴う単角子宮に対し腹腔鏡下手術を行った1例

五十嵐秀樹, 高橋俊文, 堤 誠司, 網田光善, 高橋一広

山形大学医学部産科婦人科講座
(平成26年11月26日受理)

要 旨

非交通性副角子宮を伴う単角子宮はミュラー管発生異常による希な先天性子宮奇形である。典型的な症状は子宮留血腫と子宮内膜症による進行性の下腹部痛と月経困難症である。また、高頻度に腎尿路系の奇形を伴う。我々は重度の下腹部痛と月経困難症を呈した非交通性副角子宮を有する単角子宮の16歳の患者に対し、腹腔鏡による診断と加療を行った。診断的腹腔鏡検査と子宮鏡検査を施行し、非交通性副角子宮を伴う単角子宮と診断した。さらにGn-RH作動薬を投与して症状と子宮内膜症を改善させた後、腹腔鏡下に副角子宮摘出術を施行した。低侵襲で審美性に優れた腹腔鏡下手術は、非交通性副角子宮を伴う単角子宮の治療に有用である。

キーワード：子宮奇形、単角子宮、非交通性副角子宮、腹腔鏡

緒 言

非交通性副角子宮を伴う単角子宮は、アメリカ不妊学会のミュラー管奇形分類 (ASRM分類) ではIIb型に分類される非常に希な先天性子宮奇形である (図1)^{1), 2)}。非交通性副角子宮を伴う単角子宮は子宮内膜症、子宮留血腫による下腹部痛と月経困難症を呈するため、根治治療には副角子宮の摘出術が必要となる。今回、我々は非交通性副角子宮を腹腔鏡下に摘出し得た症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

【症例】16歳、0経妊

【主訴】左下腹部痛、月経困難

【月経歴】初経12歳、以降月経周期35日~40日周期

【家族歴】特記すべき事項なし。

【既往歴】特記すべき事項なし。

【現病歴】増強する左下腹部痛と月経困難を訴え、近医受診となった。経腔超音波検査、MRIにて左卵巣腫瘍または重複子宮が疑われたため、精査と加療を目的に当院を紹介された。

【現症】身長157.4cm、体重48.6kg 外陰部は正常女性型。腔鏡診で子宮腔部は1つで腔中隔を認めなかった。内診は同意が得られなかったため施行しなかった。

【検査所見】

経腔超音波検査：正常形態をした右子宮と内部に血液貯留を伴う左子宮を認めた。

MRI：水平断で骨盤左側に子宮留血腫と卵管留血腫を認めた。骨盤右側には正常子宮を認めた (図2)。

CT：右重複腎盂と右重複尿管を認めたが、左腎臓は同定されなかった。

静脈性腎盂造影検査：右重複腎盂と右重複尿管が造影されたが、左腎盂と尿管は造影されなかった (図3)。

腫瘍マーカー：CA125 82 U/ml (正常値35 U/ml以下)、CA19-9<5 U/ml (正常値37 U/ml以下)

【治療経過】非交通性副角子宮を伴う単角子宮を疑い、その確定診断の目的で腹腔鏡検査および子宮鏡検査を予定した。患者が長期休暇に検査を希望したため、待機時の症状改善目的にgonadotropin-releasing hormone (Gn-RH) 作動薬を投与した。Gn-RH作動薬を4ヶ月間投与した後、第1回入院にて腹腔鏡検査および子宮鏡検査を施行した。腹腔鏡検査は3mm径の内視鏡を用い、気腹法にて行った。右単角子宮は鶏卵大以下で、右卵管と右卵巣も正常所見であった。一方、

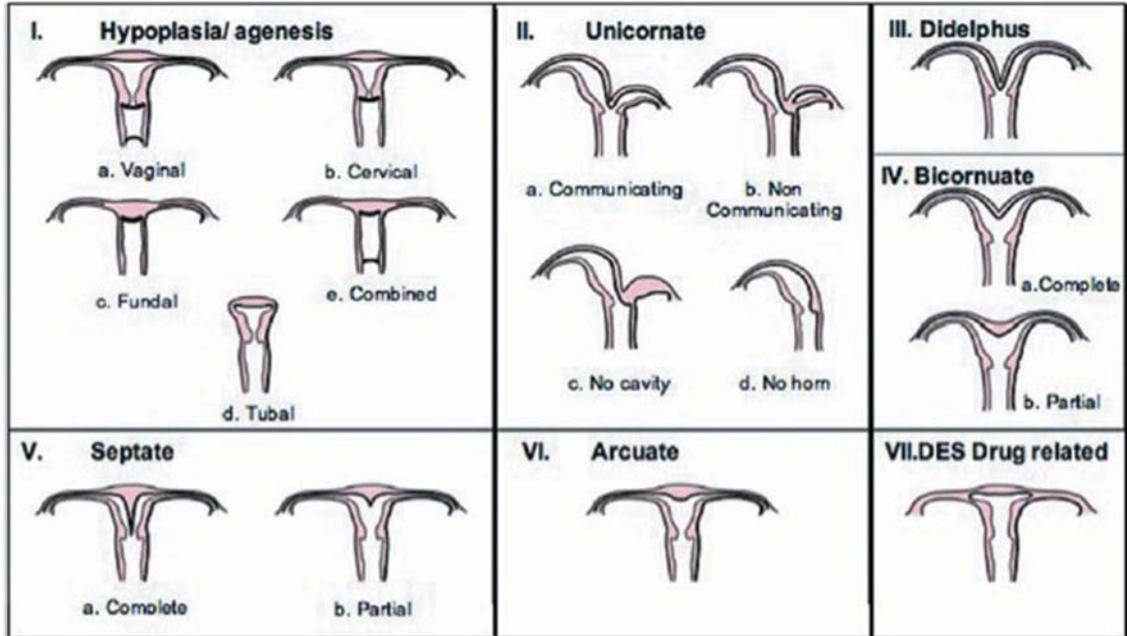


図1. アメリカ不妊学会のミュラー管奇形分類 (ASRM分類)

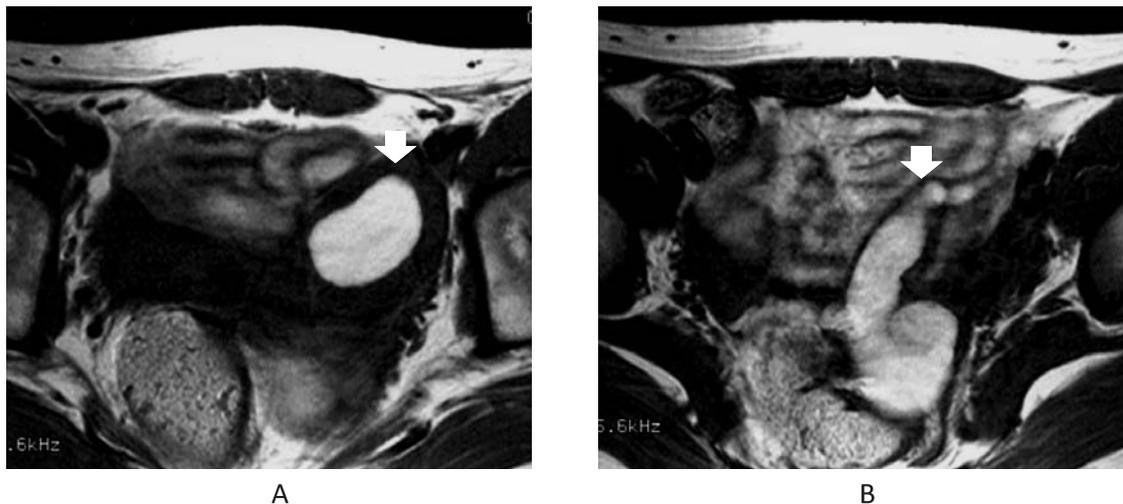


図2. MRI (T1強調画像水平断) では、(A) 左側に子宮留血腫 (矢印) と (B) 卵管留血腫 (矢印) を認める。右側に正常子宮を認め、非交通性副角子宮を有する右単角子宮が疑われる。

左副角子宮は留血腫のため鶏卵大に腫大し、棍棒上に腫大した左卵管留血腫も認めた (図4)。骨盤腹膜全体に左側卵管からの経血逆流により生じたと考えられるヘモジデリンの沈着を認めた。腹腔内に子宮内膜症病巣とそれによる癒着を認め、子宮内膜症はR-AFS分類でステージIIIと診断された。続いて子宮鏡検査を施行した。右単角子宮に子宮鏡を挿入して観察したが、左副角子宮との交通性は確認されなかった。これらの所見から非交通性左角子宮を伴う右単角子宮と診断し

た。根治治療には腹腔鏡下左副角子宮および左卵管摘出術が適当と判断し、患者の次回の長期休暇に手術を予定した。

外来でさらにGn-RH作動薬を3ヶ月間使用し、第2回入院で腹腔鏡下左副角子宮および左卵管摘出術を施行した。手術は5mm内視鏡を用い、気腹法で行った。腹腔内所見は前回とほぼ同様であったが、子宮内膜症の腹膜表在性病巣は前回検査時の3cm以上 (R-AFS分類で4点) から1~3cm (同2点) へ改善していた

腹腔鏡下に非交通性副角子宮を切除した1例



図3. 静脈性腎盂造影検査では右重複腎盂と右重複尿管を認める。左腎盂と尿管は造影されず、左腎尿管欠損と診断される。

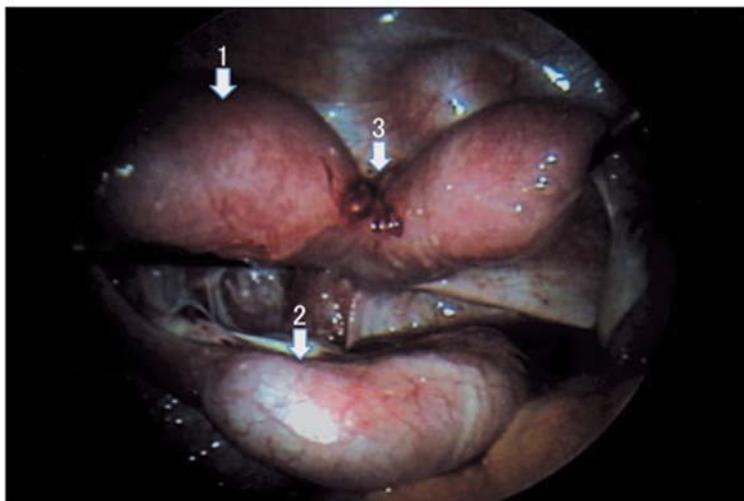
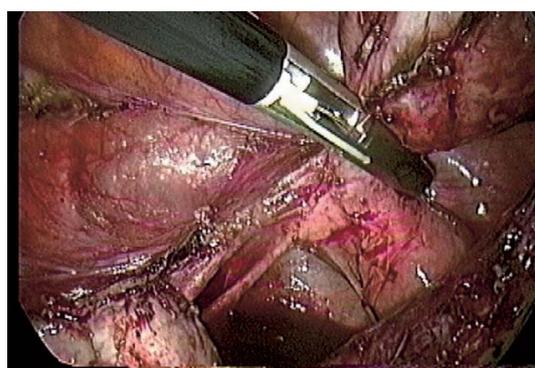


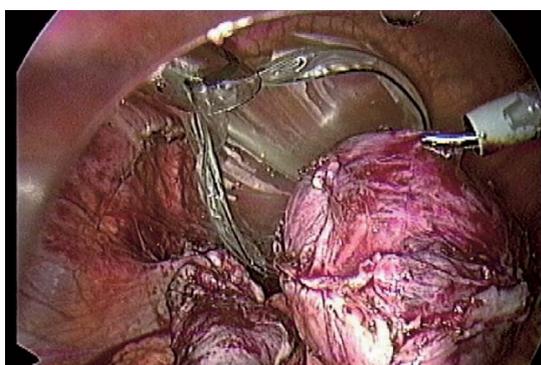
図4. 腹腔鏡検査では子宮留血腫を呈する左副角子宮（矢印1）と卵管血腫（矢印2）を認める。腹膜にはヘモジデリンの沈着（矢印3）を認め、R-AFS分類でステージⅢ期の子宮内膜症と診断される。



A



B



C



D

図5. (A) Gn-RH作動薬使用後の腹腔内所見では腹腔内のヘモジデリン沈着の減少が認められる。
 (B) 副角子宮と卵管の切除は超音波凝固切開装置を用いて行った。
 (C) 腹腔鏡手術用の回収バッグを用い、摘出子宮を回収した。
 (D) 手術終了時の腹腔内所見。右単角子宮、卵管、卵巣と左卵巣は残存する。

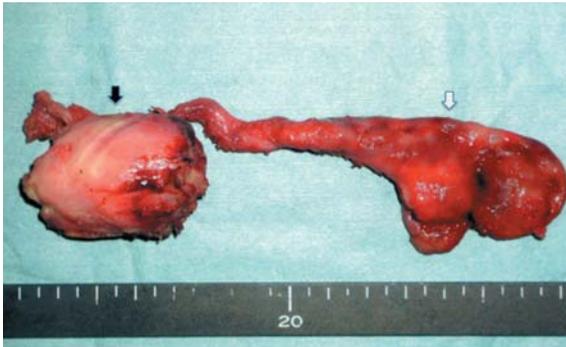


図6. 摘出標本は子宮内と卵管内に血液貯留を認めた(黒矢印は左副角子宮、白矢印は左卵管を示す)。

(図5 A)。まず相互に癒着した左副角子宮、左卵管血腫、左卵巣それぞれの癒着を剥離した。左広間膜を展開し、左卵管留血腫を周囲組織から単離した。左円靭帯を切断し、広間膜を展開して左副角子宮の傍子宮組織を切除した。子宮動脈はクリッピングした後に切断した。超音波凝固切開装置を用い、左副角子宮と右単角子宮を切り離し(図5 B)、左副角子宮と左卵管を一塊に切除した。切除組織は左側腹部のトロッカー留置創を3 cmに拡大し、同部位から腹腔鏡手術用の回収バッグを挿入することで、容易に回収できた(図5 C)。手術時間は2時間45分、出血量は少量であった。摘出標本は子宮内と卵管内に血液貯留を認めた(図6)。術後経過は良好で、手術後5日目で退院となった。

考 察

女性生殖器は一对のウォルフ管、ミュラー管を原基として発生する。ミュラー管は子宮、卵管、膈上部2/3を形成するため、胎生期のミュラー管発生異常により、様々な女性生殖器奇形が発生する。子宮奇形は米国不妊学会によると7つのクラス、さらに16亜型に細分類される^{1),2)}。単角子宮は片側ミュラー管の完全または不完全な発生停止によるとされ、クラスIIに分類される。さらに単角子宮は、単角子宮と交通のある副角子宮を伴う(II a)、交通のない副角子宮を伴う(II b)、内腔のない副角子宮を伴う(II c)、副角子宮を伴わない(II d)の4亜型に分類される。本症例は子宮鏡検査で単角子宮と副角子宮の交通性が無いことが確認され、クラスII bと診断された。子宮奇形の頻度は正常妊娠・分娩を経験している女性では3.2%、妊娠第1期の反復流産を経験している女性では5~10%、

そして妊娠第1期後半または妊娠第2期での流産を経験している女性では25%以上と報告されている³⁾。単角子宮の子宮奇形に占める割合は約20%で、その中でクラスII bは22%を占めると報告されている³⁾。また、ミュラー管発生異常は腎尿路系、腎血管系の発生異常を伴いやすく、単角子宮では36~40.5%^{4),5)}に腎奇形を伴うと報告されている。中でも腎欠損の頻度が最も高く、66.7%と報告されている。本症例でもCTで左腎欠損が認められた。

腹腔鏡下手術を受けた単角子宮症例に限れば、手術時の年齢は13歳から34歳、平均24.5歳⁷⁾であり、若年から生殖年齢にかけて症状を呈することが分かる。よって、単角子宮に伴う症状、併発症については非妊娠時と妊娠時に分けて論ずる必要がある。非妊娠時には副角子宮が交通性、非交通性にかかわらず、初経後から徐々に増強する月経困難、腹痛が最も特徴的であり、その原因として子宮内膜症、子宮留血腫と卵管留血腫の併発が挙げられる。その頻度は非交通性副角子宮を有する場合で55%⁴⁾と報告されている。子宮内膜症の発生は副角子宮、卵管を介した月経血逆流により内膜細胞が異所性に移植される(Sampsonの移植説)、あるいは月経血の刺激により腹膜・卵巣表層上皮が化生誘導されるなどの発症メカニズム(化生説)が推測されている。本症例でも増強する月経困難、腹痛を主訴とし、子宮内膜症、子宮留血腫と卵管留血腫を併発症として認めた。妊娠時の併発症として、単角子宮妊娠では妊娠第1期、第2期の流産、妊娠第2期の早産、子宮内胎児発育遅延、子宮内胎児死亡が挙げられる⁸⁾。単角子宮で妊娠第1期の流産、子宮内胎児発育遅延、子宮内胎児死亡が発症するメカニズムとして、子宮の血流異常(子宮、卵巣動脈の欠損または異常による)が想定されている³⁾。また妊娠第2期の流産、早産が発症するメカニズムとして、単角子宮の筋組織量の減少と子宮頸管無力症が想定されている⁹⁾。一方、副角子宮妊娠は76,000~150,000妊娠に1例¹⁰⁾と非常に希であるが、子宮破裂の発症増加が報告されている^{10),11)}。副角子宮妊娠588例を解析したレビュー¹⁰⁾では50%の症例に子宮破裂が発症し、13%は妊娠第1期、67%は妊娠第2期であったと報告している。子宮破裂時の母体死亡率は1900年代前半で6~23%であったのに対し、現在では0.5%未満に改善している¹⁰⁾。副角子宮妊娠の早期発見が死亡率低下に重要な役割を果たしていると考えられる。

子宮奇形の診断には、まず簡便に施行可能な経膈超音波検査が有用である。超音波検査で子宮奇形が疑われた場合、MRIを施行することで詳細に子宮の輪郭、

内腔の形態を把握可能である^{2), 3), 6)}。また、MRIは子宮留血腫、卵管留血腫、内膜症性嚢胞の診断に極めて有用である。ミューラー管奇形分類にはMRIに加え、子宮卵管造影^{12), 13)}、子宮鏡検査^{12), 13)}が有用である。子宮卵管造影は子宮内腔の形状把握には非常に優れているが、若年女性で内診が不可能な患者では施行が難しい。本症例でも子宮卵管造影は同意が得られなかった。また、単角子宮では副角子宮の交通性を正確に診断できない場合があり、このような症例では子宮鏡検査により単角子宮と副角子宮の交通部分を直接確認することが、正確な診断に有用である。また、高率に合併する腎尿路系奇形の診断にはCTと静脈性腎盂造影検査が有用であることは論を待たない。本症では外来で経膈超音波、MRIを施行し、非交通性副角子宮を伴う単角子宮を疑った。またCT、静脈性腎盂造影検査で左腎欠損の診断が可能であった。若年患者であり、さらに正確な診断による適切な治療法を選択するために、インフォームドコンセントの上、診断的腹腔鏡検査と子宮鏡検査を行い、非交通性副角子宮を伴う単角子宮の診断を得ることが可能であった。

単角子宮の治療は先に述べた症状、併発症のため副角子宮と同側卵管の摘出が基本である。手術侵襲、審美性を考慮し、近年では腹腔鏡で行われることが多い^{7), 14), 15) 16)}。また、開腹手術に比較して腹腔鏡下手術では、手術部位の術後癒着を来すことが少ない。よって、生殖年齢の女性の妊孕性に及ぼす影響は少ないと考えられ、腹腔鏡下手術の大きなメリットと言える。腹腔鏡は診断から治療まで一期的に行うことが可能であるが、本症例のように患者が若年、未成年である場合はより慎重な診断と治療が行われるべきである。本症例では第1回入院時に確実な診断を得て、その情報をもとに患者と家族に治療についての十分なインフォームドコンセントを実施し得た。また、腹腔鏡所見をもとに腹腔鏡下副角子宮摘出術のシミュレーションを充分に行うことで、第2回入院時の手術はスムーズに行い得た。術前のGn-RH作動薬の使用には、手術の待機期間の症状改善、術前の子宮内膜症、子宮留血腫、卵管留血腫の改善などのメリットが挙げられる^{17), 18)}。本症例は患者が高校生であり、長期休暇での手術を希望したため、手術待機中に計7ヶ月間Gn-RH作動薬を使用し、症状の改善を得ることが出来た。また、副角子宮摘出時に問題になるのは、子宮内膜症による子宮と周囲組織の高度癒着であり、時に尿管損傷を来すことがあるが、本症例では子宮内膜症による癒着の剥離は比較的容易に施行できた。術前のGn-RH作動薬の投与が子宮内膜症病巣とそれによる癒着を改善させ、手

術の安全性に寄与したと考えられる。術前に尿管の走行を確認していない場合は、手術中の確認を必要とするが、確認に苦慮する症例も報告されている¹⁶⁾。本症例では術前の左腎と尿管の欠損を確認していたため、尿管損傷の心配をせずに安全に副角を摘出することが可能であった。単角子宮に対する腹腔鏡下手術は術前の画像診断を正確に行い、腎尿路系の奇形を術前に評価することで安全に行うことが可能で、治療の第一選択に成り得ると考えられる。

結 語

希な子宮奇形である非交通性副角子宮を有する単角子宮を、腹腔鏡下手術で治療し得た1例を報告した。単角子宮の診断にはMRI、子宮鏡、腹腔鏡が、腎尿路系の奇形の診断にはCT、静脈性腎盂造影検査が有用であった。術前のGn-RH作動薬の併用は、手術待機期間の症状を緩和し、また腹腔内の子宮内膜症病巣を改善でき、安全な手術施行に寄与したと考えられる。副角子宮に対する腹腔鏡下副角子宮摘出術は安全に行い得る低侵襲手術であり、治療の第一選択に成り得ると考えられる。

文 献

1. The American Fertility Society: The American Fertility Society classification of adnexal adhesions, distal tubal occlusion, tubal pregnancies, Mullerian anomalies and intrauterine adhesions. *Fertil Steril* 1998; 49: 944-955
2. Chandler TM1, Machan LS, Cooperberg PL, Harris AC, Chang SD.: Mullerian duct anomalies: from diagnosis to intervention. *Br J Radiol* 2009; 82: 1034-1042
3. Khati NJ, Frazier AA, Brindle KA: The unicornuate uterus and its variants: clinical presentation, imaging findings, and associated complications. *J Ultrasound Med* 2012; 31: 319-331
4. Jayasinghe Y1, Rane A, Stalewski H, Grover S.: The presentation and early diagnosis of the rudimentary uterine horn. *Obstet Gynecol* 2005; 105: 1456-1467
5. Fedele L, Bianchi S, Agnoli B, Tozzi L, Vignali M.: Urinary tract anomalies associated with unicornuate uterus. *J Urol* 1996; 155: 847-848
6. Troiano RN, McCarthy SM.: Mullerian duct anomalies: imaging and clinical issues. *Radiology* 2004; 233: 19-34

7. 太田邦明, 浅川恭行, 林秀隆, 前村俊満, 森田峰人, 久保春海: 腹腔鏡下非交通性副角子宮切除術を行った単角子宮の1例. 日産婦内視鏡学会 2004; 20: 212-217
8. Reichman D, Laufer MR, Robinson BK.: Pregnancy outcomes in unicornuateuteri: a review. *Fertil Steril* 2009; 91: 1886-1894
9. Donderwinkel PF, Dörr JP, Willemsen WN.: The unicornuate uterus: clinical implications. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1992; 19: 135-139
10. Nahum GG.: Rudimentary uterine horn pregnancy. The 20th-century worldwide experience of 588 cases. *J Reprod Med* 2002; 47: 151-163
11. Siwatch S, Mehra R, Pandher DK, Huria A.: Rudimentary horn pregnancy: a 10-year experience and review of literature. *Arch Gynecol Obstet* 2013; 287: 687-695
12. Pellerito JS, McCarthy SM, Doyle MB, Glickman MG, DeCherney AH.: Diagnosis of uterine anomalies: relative accuracy of MR imaging, endovaginal sonography, and hysterosalpingography. *Radiology* 1992; 183: 795-800
13. Ludwin A, Ludwin I, Banas T, Knafel A, Miedzyblocki M, Basta A.: Diagnostic accuracy of sonohysterography, hysterosalpingography and diagnostic hysteroscopy in diagnosis of arcuate, septate and bicornuate uterus. *J Obstet Gynaecol Res* 2011; 37: 178-186
14. Medeiros LR, Rosa DD, Silva FR, Silva BR, Rosa MI.: Laparoscopic approach of a unicornuate uterus with noncommunicating rudimentary horns. *ISRN Obstet Gynecol* 2011; 2011: 906138
15. Zapardiel I, Alvarez P, Perez-Medina T, Bajo-Arenas JM.: Laparoscopic management of a cavitated noncommunicating rudimentary uterine horn of a unicornuate uterus: a case report. *J Med Case Rep* 2010; 19: 215
16. 稲葉不知之, 稲葉未知世: 片腎無形成を伴った非交通性副角子宮の1症例—無形成腎に長期間気付かずに経過していた症例から学ぶ—. *関東産婦誌* 2012; 49: 123-128
17. Mais V, Guerriero S, Ajossa S, Piras B, Melis GB.: Endosonographic diagnosis, pre-operative treatment and laparoscopic removal with endoscopic stapler of a rudimentary horn in a woman with unicornuate uterus. *Hum Reprod* 1994; 9: 1297-1299
18. Matalliotakis IM1, Goumenou AG, Koumantakis GE, Neonaki MA, Koumantakis EE, Arici A.: Pulmonary endometriosis in a patient with unicornuate uterus and noncommunicating rudimentary horn. *Fertil Steril* 2002; 78: 183-185

A 16-year-old woman undergoing laparoscopic management of unicornuate uterus with a noncommunicating rudimentary horn: A case report

**Hideki Igarashi, Toshifumi Takahashi, Seiji Tsutsumi,
Mitsuyoshi Amita, Kazuhiro Takahashi**

Department of Obstetrics and Gynecology, Yamagata University, Faculty of Medicine

ABSTRACT

A unicornuate uterus, a rare congenital malformation of the female reproductive system, occurs due to abnormal or failed development of one of the paired Müllerian ducts. The typical symptom is lower abdominal pain and dysmenorrhea, caused by hematometra and/or endometriosis. Renal and urinary anomalies are often associated with unicornuate uteri. A 16-year-old woman who developed progressive severe pelvic pain and dysmenorrhea was evaluated at our hospital. Accurate diagnosis of a unicornuate uterus with a noncommunicating rudimentary horn with hematometra and endometriosis was confirmed with laparoscopy and hysteroscopy. Pre-operative treatment with a gonadotropin-releasing hormone agonist enabled improvement in the symptoms and endometriosis. Finally, the patient was successfully treated with laparoscopic removal of the rudimentary horn. Minimal invasive and cosmetic laparoscopic surgery is suitable for this rare congenital uterine anomaly.

Key words : uterine anomaly, unicornuate uterus, non-communicating rudimentary horn, laparoscopic surgery