

症例報告

当院で経験した鼠径部子宮内膜症の6例 —病因, 診断, 管理を考える—

片岡 恒*, 伊藤 文武, 志村 光揮, 菅原 拓也
高岡 宰, 森 泰輔, 北脇 城

京都府立医科大学大学院医学研究科女性生涯医科学

Six Cases of Inguinal Endometriosis in Our Hospital Considering Pathogenesis, Diagnosis, and Management

Hisashi Kataoka, Fumitake Ito, Koki Shimura, Takuya Sugahara
Osamu Takaoka, Taisuke Mori and Jo Kitawaki

Department of Obstetrics and Gynecology,

Kyoto Prefectural University of Medicine Graduate School of Medical Science

抄 録

鼠径部子宮内膜症は稀少部位子宮内膜症のひとつであり、極めて稀な疾患である。そのため、その病因や診断、治療については一定の見解がないのが現状である。当院で2009年から2019年に経験した鼠径部子宮内膜症6例から、これらについて検討した。鼠径部子宮内膜症の発生機序については血行性・リンパ行性の進展やNuck管水腫や鼠経ヘルニアからの直接浸潤などが考えられているが、当院で経験した症例からは、子宮内腔から経脈管性に病変を生じたと考えられた。骨盤MRIではT1強調像で特徴的な結節状または点状の高信号域を含む腫瘤として捉えられ、全例で月経時の疼痛を認めていた。完全切除を目指した外科的治療が行われるが、すぐに手術を望まない患者や再発予防のために内分泌治療が行われる。当院の症例ではジェノゲストの投与により病変の縮小と症状の消失がみられ、また再発予防効果も認められた。

キーワード：鼠径部子宮内膜症, 外科的切除, 内分泌療法, ジェノゲスト。

Abstract

Inguinal endometriosis is a type of extragenital endometriosis and an extremely rare disease. Therefore, its pathogenesis and treatment are not characterized yet. In this study, we retrospectively reviewed six cases of inguinal endometriosis in our facility to investigate its etiology, diagnosis and operative or medical management. Inguinal endometriosis may develop in the inguinal lesion from

令和3年1月7日受付 令和3年1月27日受理

*連絡先 片岡 恒 〒602-8566 京都市上京区河原町通広小路上ル梶井町465番地

hlm-11@koto.kpu-m.ac.jp

doi:10.32206/jkpum.130.03.205

direct implantation, tubal regurgitation and lymphatic spread. In our cases, it might have spread intravascularly from the uterine cavity. In all patients who underwent MRI in our case series, nodular or pointed hyperintensities were seen in the T1-weighted images. In addition, all the patients had swelling and pain in the inguinal region during menstruation. Surgery for complete resection is often performed; however, hormonal therapy is performed in patients who do not want surgery or to avoid recurrence. In our cases, dienogest was effective for the reduction of inguinal endometriosis lesion, pain improvement, and prevention of recurrence.

Key Words: Inguinal endometriosis, Surgical resection, Endocrine Therapy, Dienogest.

はじめに

子宮内膜症は子宮内膜間質を伴う子宮内膜腺上皮が子宮腔内以外に生着、増殖する疾患であり、生殖年齢女性の約5~10%に発症するとされている。多くは卵巣などの骨盤内臓器や腹膜であり、消化管、肺、臍などの骨盤外に発生することは非常に稀である。そのうち、鼠径部子宮内膜症は頻度1%未満の稀少部位子宮内膜症であることから、その病因や、治療、管理方法などは確立されていないのが現状である。当院では2009年から2019年の10年間に6例の鼠径部子宮内膜症を経験した。病因や治療、管理に重要であった3症例を提示し、これらについて考察する。

症 例 1

30歳女性

主訴：鼠径部の月経時疼痛

妊娠分娩歴：未妊

家族歴：特記事項なし

既往歴：特記事項なし

月経歴：初経12歳、月経周期30日、整

現病歴：月経時に鼠径部の疼痛を認めていた。右鼠径部に腫瘤を認め近医受診し、鼠径部子宮内膜症の可能性を指摘され当院紹介受診となった。内診では子宮・卵巣には明らかな異常を認めず、右鼠径部に約20mm程度の腫瘤を触知し、同部位に圧痛を認めた。腫瘍マーカーはCA-125、CA19-9、CEAはそれぞれ正常範囲内であった。骨盤MRI検査では、骨盤内に明らかな異常を認めず、右恥骨前に子宮円索に連続するように約25mm大の辺縁不整な腫瘤を認め、T1、T2強調像ともに比較的低信号を示し、T1強調像では出血を疑う結節状の高信号を認めた(図1)。臨床所見、画像所見より鼠径部子宮内膜症と診断し、本人と相談した上で、腹腔鏡下手術を併用した手術方針とした。

手術所見：全身麻酔下に腹腔鏡で腹腔内を観察すると、子宮・両側付属器に明らかな異常は認めなかったが、膀胱子宮窩腹膜と子宮広間膜前葉に数個のblueberry spotを認めた。明ら

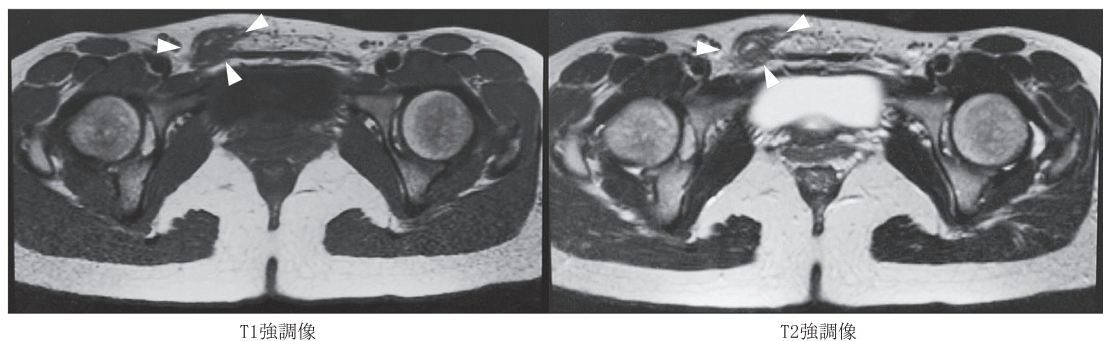


図1 骨盤MRI画像(症例1)

かな癒着形成は認めなかった。腫瘍上の皮膚に約 4 cm の切開を加え、腫瘍を触知しながら十分なマージンを確保して腫瘍を摘出した。この腫瘍は右子宮円索と連続していた。また子宮腔内にインジゴカルミン色素を充満させると右子宮円索に沿って淡い染色を認めたが、左子宮円索では認めなかった(図 2)。手術時間は 57 分、出血量は少量であった。

病理学的所見：ヘモジデリン沈着を伴う線維性結合組織からなる嚢胞で、所々に異形の乏しい単層または円柱上皮に被覆された内腔がみられ、腺管周囲に内膜間質細胞も観察される。子宮内膜症に合致する所見であった(図 3)。

経過：経過に特に異常を認めず、術後 4 日目に退院となった。妊娠希望があったため術後は

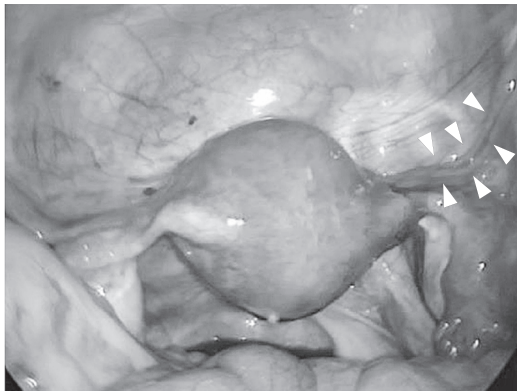


図 2 右円索のインジゴカルミン色素の染色
子宮腔内から右円索へのインジゴカルミンの流出を認める(△部)

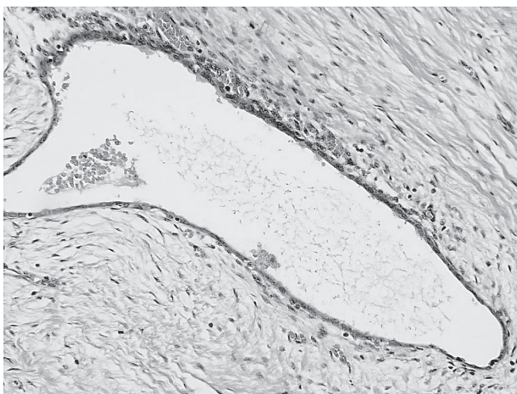


図 3 摘出組織の HE 染色(症例 1)

無投薬にて外来経過観察しており、術後 2 年 6 か月の時点で再発は認めていない。

症 例 2

30 歳女性

主訴：鼠径部の違和感、月経時疼痛

妊娠分娩歴：1 妊 0 産

家族歴：特記事項なし

既往歴：特記事項なし

月経歴：初経 13 歳、月経周期 28 日、整

現病歴：月経時に鼠径部の違和感、疼痛を認めていた。3 年前に近医で Nuck 管水腫と右鼠径部子宮内膜症を診断されていた。月経困難症状と右鼠径部病変のフォローを希望され、当院に紹介受診となった。内診では子宮と卵巣に明らかな異常を認めず、右鼠径部に約 20 mm 大の腫瘍を触知し、同部位に圧痛を認めた。腫瘍マーカーは CA-125 が 273.2 U/mL と上昇を認め、骨盤 MRI では T1 強調像で点状の高信号域を含む境界不明瞭な約 17 mm 大の腫瘍を認めた。右鼠径部子宮内膜症の診断にて外科的切除、内分泌治療を提示したが、すぐの手術は望まれず、低用量エストロゲンプロゲステン製剤(LEP)の投与にて経過をみることにした。

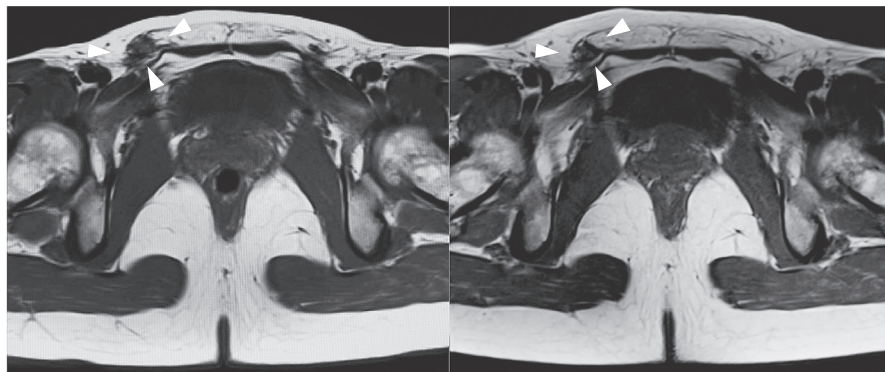
経過：LEP 投与開始後、月経痛や過多月経などの月経困難症状は改善を示し、また月経時の右鼠径部の疼痛も改善を認めていた。その後約 3 年間、LEP の内服治療を継続していたが、右鼠径部の病変の大きさに変化はないものの、月経時の右鼠径部痛の再燃と増悪を認めたためジェノゲストの内服へ変更した。2 か月後には右鼠径部痛は消失し、さらに投与 1 年後の骨盤 MRI では、右鼠径部腫瘍は約 10 mm 大へと縮小を認めた。現在、ジェノゲスト投与継続中であり、病変の増大や症状の再燃は認めていない(図 4)。

症 例 3

46 歳女性

主訴：鼠径部の腫瘍感、月経時の軽度腫大と疼痛

妊娠分娩歴：1 妊 0 産



ジェノゲスト投与前 (T1強調画像)

ジェノゲスト投与後 (T1強調画像)

図4 ジェノゲスト投与前後の骨盤MRI (症例2)

家族歴：特記事項なし

既往歴：子宮筋腫核出術 (37歳)

月経歴：初経13歳，月経周期28日，整

現病歴：月経時に左鼠径部腫瘍の膨隆と疼痛を自覚していた。人間ドッグ受診時に鼠径部子宮内膜症の可能性を指摘され当科に紹介受診となった。内診では明らかな異常を認めず，左鼠径部に約30mm程度の腫瘍を触知し，同部位に圧痛を認めた。腫瘍マーカーはCA-125が72.1 U/mL，CA19-9が89.2 U/mLと上昇を認めた。骨盤MRIでは，子宮の背側に分葉状の多房性嚢胞性病変を認め，T1強調像で高信号，脂肪抑制を受けず，T2強調像で低信号を示す約60mm大の嚢胞性病変を認め，右卵巣子宮内膜症性嚢胞が疑われた。また嚢胞の近傍を尿管が通過し，同部位の尿管狭窄が疑われた。左鼠径部には境界がやや不明瞭な，T1強調像で点状の高信号域を示す約35mm大の腫瘍性病変を認めた。右卵巣子宮内膜症性嚢胞と左鼠径部子宮内膜症の診断で腹腔鏡による手術と左鼠径部腫瘍摘出を行うこととした。

手術所見：全身麻酔下に腹腔鏡で腹腔内を観察すると子宮と左付属器に明らかな異常は認めなかったが，右卵巣は約60mm大に腫大しダグラス窩に嵌まり周囲の腹膜と腸間膜，子宮と癒着を形成していた。癒着を丁寧に剥離し右付属器を摘出した。右尿管は後腹膜腔内で子宮内膜症と思われる周囲組織と強固に癒着し屈曲し

ていたため，可及的に剥離し周囲組織から完全に遊離させた。次に左鼠径部腫瘍上の皮膚に約4cmの皮膚切開を加え，腫瘍を触知しながら十分なマージンを確保して腫瘍を摘出した。手術時間は427分，出血量は78gであった。

病理学的所見：右卵巣，左鼠径部腫瘍の結合組織内に異所性の内膜組織を認め，子宮内膜症の所見であった。

経過①：術後は本人と相談し，無投薬にて経過観察としていたが，4年後から左鼠径部にしこりと疼痛を自覚するようになった。骨盤造影MRIをおこなったところ，左鼠径部にT1強調像で一部に高信号を示し，T2強調像では低～高信号が混在する約40mm大の不整形腫瘍を認め，左鼠径部子宮内膜症の再発と考えられた(図5)。腫瘍マーカーはCA-125が101.1 U/mL，CA19-9が161.1 U/mLと上昇を認めた。本人はすぐの手術を望まず，ジェノゲスト内服にて経過をみていたが，2か月後に腫瘍のさらなる増大を認めたため，腹腔鏡による腹腔内検索と再発左鼠径部子宮内膜症摘出術を行うこととした。腹腔鏡による観察では腹腔内に明らかな子宮内膜症を疑わせる所見を認めなかった。左鼠径部の腫瘍直上に約6cmの皮膚切開を加え腫瘍の摘出を行ったが，腫瘍の底部は長内転筋部あるいは恥骨筋部に進展していたため断端を少し残存するように摘出せざるを得なかった。手術時間は95分，出血は34gであった。

病理学的所見：立方状の異型細胞が不規則な拡張を示す環状構造を形成し増殖している。異型細胞は **hobnail pattern** が目立ち、時に淡明な細胞質を有する細胞がみられ、またこれらの腫

瘍部に隣接して非腫瘍性の内膜症組織が認められる。子宮内膜症を背景とした明細胞癌と考えられ、断端は広く陽性であった (図 6)。

経過②：外科的切除断端は陽性であり、また



肉眼的所見

T2強調像

図 5 悪性転化例の肉眼的所見と骨盤 MRI (症例 3)

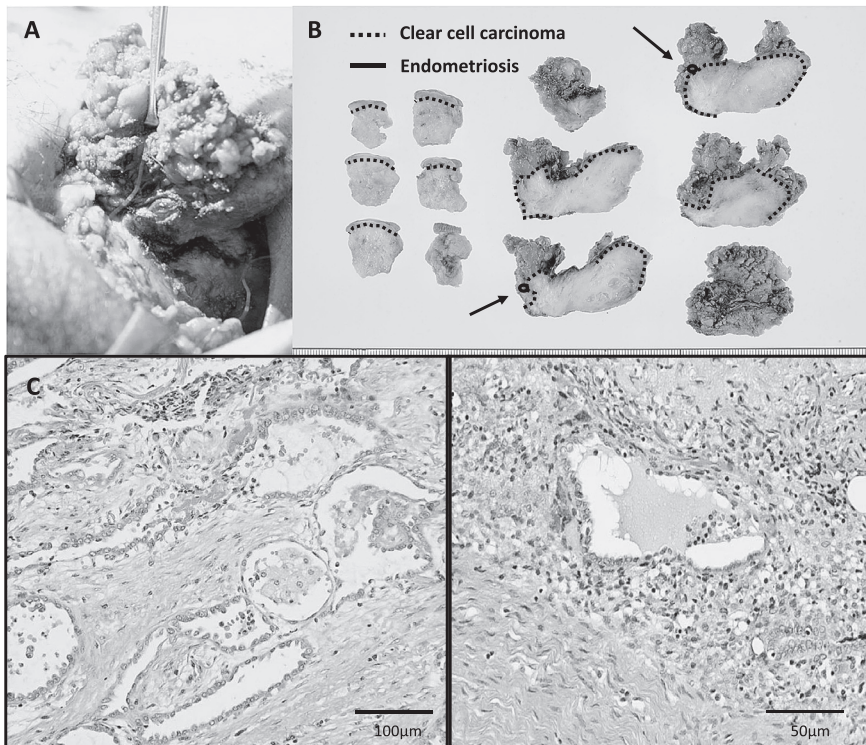


図 6 悪性転化症例の手術摘出標本と病理組織診断 (症例 3)

A：周囲組織と強固に癒着を形成 B：摘出標本 (破線：明細胞癌部、実線：内膜症部) C：摘出組織の HE 染色

術後のPET-CTにて腫瘍の残存が確認されたため、パクリタキセルとカルボプラチンによる化学療法を行っている。

考 察

稀少部位子宮内膜症とは、消化器系、泌尿生殖器系や呼吸器系など、性器および骨盤外に発生する子宮内膜症であり、その一つである鼠径部子宮内膜症の頻度は全子宮内膜症のうち約0.3%~0.6%と報告されている。1896年にCullen¹⁾によって初めて報告され、本邦では1936年に中村²⁾によって報告されている。当院では2009年から2019年の間に約1450例の子宮内膜症患者を経験し、鼠径部子宮内膜症の頻度は6例(約0.4%)と既報と同等程度であった。また稀少部位子宮内膜症は全体で26例あり、そのうち鼠径部子宮内膜症の割合は約23%であった。鼠径部子宮内膜症の発生部位としては子宮円索、ヘルニア嚢、皮下などがあるが、鼠経管内発生の報告が多い。本邦の41例の報告中、子宮円索が45%、ヘルニア嚢が18%であり、当院で経験した6症例のように鼠径管と直接関連のない孤立性の皮下の発生は

9.8%であった³⁾。子宮内膜症の発生・進展機序は諸説あるが、代表的なものとして①月経血の逆流説、②体腔上皮化生説、③血行性・リンパ行性説、④幹細胞説などが挙げられる。子宮円索は発生学的に卵巣導帯の下半部にあたり、解剖学的には平滑筋、結合織、脂肪、血管、リンパ管、神経を含み、鼠径部を通過して恥骨に付着している。鼠径部子宮内膜症は、子宮円索に沿ったリンパ・血行性経路が発生過程に重要であるといわれているが、Nuck管水腫や鼠経ヘルニアからの直接浸潤である可能性も指摘されている⁴⁾。われわれが経験した症例では、子宮腔内に注入したインジゴカルミン色素が病変側の子宮円索に沿って拡がりを認め、子宮内膜組織がリンパ・血行性に子宮円索を介して鼠径部に生着、増殖している可能性が考えられた。

また鼠径部子宮内膜症の91%に腹腔内に子宮内膜症病変を認めたとの報告がある⁵⁾。当院の6例のうち、少なくとも5例に腹腔内の内膜症病変が確認され、鼠径部子宮内膜症を疑った場合は腹腔内の内膜症病変の検索を考慮すべきであると考えられる。

比較的稀な疾患である鼠径部子宮内膜症に対

表 症例の一覧

初診時 年齢	妊娠 分娩歴	主訴	病 変	rASRM Score	病理診断	腹腔内 内膜症 病変	内分泌療法	経過	観察期間	
1	30	G0P0	月経時の 鼠径部痛	右	1	Endometriosis	(+)	-	再発なし	1年11か月
2	30	G1P0	鼠径部の違 和感 月経時痛	右	-	-	(+)	LEP3年 DNG2年	縮小	6年3か月
3	46	G1P0	鼠径部の月 経時増大	左	98	Endometriosis 再発でCCC	(+)	-	術後4年で 悪性転化	6年8か月
4	39	G2P2	月経時 鼠径部痛	右	68	Endometriosis	(+)	DNG2年	再発なし	6年1か月
5	41	G0P0	鼠径部痛	左	76	Endometriosis	(+)	-	再発なし	3年3か月
6	43	G0P0	月経時の 鼠径部痛	右	-	Endometriosis	未検索	DNG4年	再発後 DNGにて縮小	7年1か月

CCC: clear cell carcinoma, LEP: low dose estrogen progestin, DNG: dienogest

する治療について一定の見解はないのが現状である。子宮内膜症の治療に倣い、外科的切除と内分泌治療が行われている。外科的切除は病理組織学的な確定診断が得られるが、癒着が高度で手術手技が難しく、完全切除が困難である場合が多い。当院でも 6 例中 5 例で初回治療として外科的切除を選択した。月経時の鼠径部痛などは消失し、創部痛などの合併症も認めていないが 1 例で再発をきたした。一方で術後再発防止に内分泌治療を施行した症例は再発なく経過しており、手術療法後はホルモン剤を用いた維持療法が必要であると考え。内分泌治療としては GnRH アゴニストや LEP、ジェノゲストなどが用いられる。今までに鼠径部子宮内膜症に対する内分泌治療の報告は少ないが、その中でもジェノゲストの有効性が報告されている⁶⁾。当院でも LEP を用いた症例では内服後に月経時の鼠径部痛などの自覚症状は一時的に改善したがその後に症状の再燃を認め、ジェノゲストへ変更している。ジェノゲスト変更後は疼痛は消失し、症状の再燃や副作用を認めることなく経過している。しかしながらジェノゲスト投与により鼠径部病変は縮小を示すものの消失には至っていない。松島らはジェノゲスト投与中の病変の摘出標本から、組織学的に子宮内膜症組織が萎縮した像を示すことを報告しており、これは症状が消失した後も内膜症組織が残存していることを示しており、治療中止後に再燃する可能性を指摘している⁷⁾。そのため鼠径部子宮内膜症の再発を回避するためには根治的な完全切除を目的とした手術療法と術後にホルモン剤を用いた維持療法が重要であるが、若年者や美容的な観点から早急な手術療法を望まないケースに対しては保存療法としてジェノゲストの長期的な投与が選択肢の一つになり得ると思われる。

一方で鼠径部子宮内膜症から悪性腫瘍を発症した報告も散見される。前方視コホート研究によると子宮内膜症の悪性化の頻度は 0.7% 程度と推定されるが、稀少部位子宮内膜症の悪性化についての報告は少なく、その実態は不明な点

が多い⁸⁾。卵巣子宮内膜症の悪性転化症例の平均年齢は 45.2 歳 (36~66 歳) で、悪性転化までの期間は約 4.5 年 (1~16 年) といわれ、特に 45 歳以上では平均 1 年程度と比較的急速に悪性化する⁹⁾。当院で経験した稀少部位子宮内膜症 26 例のうち 7 例で悪性転化を認め、平均年齢は 50.3 歳 (27~65 歳) であった。発生部位では直腸子宮内膜症が 3 例と最も多く、組織型は類内膜癌が 4 例、明細胞癌が 3 例であった。稀少部位子宮内膜症の悪性化の頻度は高く思えるが、絶対的な症例数が少ないためさらなる検討が必要と考える。腫瘍が限局している場合の 5 年生存率は 82~100% であるが、播種がある場合は 0~12% と予後は極めて悪くなることが知られている¹⁰⁾。性腺外の子宮内膜症に関連した悪性腫瘍の治療や管理方法は確立されておらず、進展範囲の診断や治療を目的とした手術による完全切除が望ましい。また、外科的治療以外には卵巣癌・腹膜癌に準じた化学療法が有効であるという報告がある¹¹⁾。われわれが経験した鼠径部子宮内膜症 6 例のうち 1 例で明細胞癌の発生を認め、完全切除を目的として手術を行ったが、断端部に腫瘍の残存を認めたため術後補助療法としてパクリタキセルとカルボプラチンを用いた化学療法を施行している。当院では稀少部位子宮内膜症と関連した悪性腫瘍については手術による完全切除を目指し、術後補助療法については卵巣癌・腹膜癌に準じプラチナ製剤を用いた化学療法を行っている。

結 語

鼠径部子宮内膜症に対してジェノゲストを中心とした内分泌治療が一定の効果を示しているが、病変の消失には至らない。手術療法のみでは完全な摘出が困難である場合が多く、再発や悪性化がみられ、再発防止・根治を目指すのであれば術後内分泌治療の併用が考慮される。また術後長期にわたるフォローアップが必要である。

開示すべき潜在的利益相反状態はない。

文 献

- 1) Cullen TS. Adeno-myoma of the round ligament. *Johns Hopkins Hosp. Bull.*, 7: 3-12, 1896.
- 2) 中村真太郎：子宮円靱帯ニ発生セル子宮内膜症ノ一例. *産婦紀要*, 19: 2508-2515, 1936.
- 3) 松尾洋一, 林 周作, 宇佐見詞津夫, 石川雅一, 加藤克己, 植田拓也：鼠径部子宮内膜症の1例. *日臨外会誌*, 61: 3369-3373, 2000.
- 4) 富田涼一：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) Albutt K, Glass C, Odom A, Gupta A. Endometriosis within a left-side inguinal hernia sac. *J Surg Case Rep*, 5, 2014. doi:10.1093/jscr/rju046.
- 6) Arakawa T, Hirata T, Koga K, Neriishi K, Fukuda S, Ma S, Sun H, Nagashima N, Harada M, Hirota Y, Wada-Hiraike O, Fujii T, Osuga Y. Clinical aspects and management of inguinal endometriosis: A case series of 20 patients. *J Obstet Gynecol Res*, 45: 2029-2036, 2019.
- 7) 松島隆, 米山剛一, 明楽重夫, 竹下俊行. 鼠径部子宮内膜症に対するジェノゲストの治療経験. *日本エンドメトリオーシス会誌*, 39: 168-172, 2018.
- 8) Kobayashi H, Sumimoto K, Moniwa N, Imai M, Takakura K, Kuromaki T, Morioka E, Arisawa K, Terao T. Risk of developing ovarian cancer among women with ovarian endometrioma: a cohort study in Shizuoka, Japan. *Int J Gynecol Cance*, 17: 37-43, 2007.
- 9) Kawaguchi R, Tsuji Y, Haruta S, Kanayama S, Sakata M, Yamada Y, Fujita H, Saito H, Tsuneto K, Kobayashi H. Clinicopathologic features of ovarian cancer in patients with ovarian endometrioma. *J Obstet Gynecol Res*, 34: 872-877, 2008.
- 10) Benoit L, Arnould L, Cheynel N, Diane B, Causeret S, Machado A, Collin F, Fraisse J, Cuisenier J. Malignant extraovarian endometriosis: A review. *Eur J Surg Oncol*, 32: 6-11, 2006.
- 11) Bergamini A, Almirante G, Taccagni G, Mangili G, Vigano P. Endometriosis-associated tumor at the inguinal site: Report of a case diagnosed during pregnancy and literature review. *J Obstet Gynecol Res*, 40: 1132-1136, 2014.