

卵管卵巣膿瘍による Pseudo-Meigs 症候群の 1 例

立花 祐毅¹⁾・一瀬 直日¹⁾・東田 太郎^{1,2)}

¹⁾ 赤穂市民病院総合診療科*

²⁾ 市立加西病院産婦人科

受付日：2018 年 2 月 9 日 受理日：2018 年 3 月 26 日

卵管卵巣膿瘍 (tuboovarian abscess : TOA) は高度な骨盤内炎症性疾患である。Pseudo-Meigs 症候群は、卵巣線維腫以外の骨盤内腫瘍に胸水および腹水を伴い、腫瘍切除で胸水・腹水も改善する症候群として知られている。

TOA に伴う Pseudo-Meigs 症候群の報告は過去にない。今回、TOA に伴い Pseudo-Meigs 症候群を示した症例を経験したので報告する。

症例は 51 歳、3 回経産 3 経産婦。他院から卵巣癌の疑いのために当院へ紹介された。当院で行った血液検査で炎症反応と CA19-9 CA125 の高値を認めた。そして画像検査では子宮の後面に約 15 cm×20 cm×30 cm の巨大な骨盤内腫瘍を認め、卵巣癌や TOA を最も疑った。抗菌薬を投与したが改善はなく経過中に胸腹水の貯留を認めた。そのため、一時卵巣癌による Pseudo-Meigs 症候群と診断したが開腹術を行い、病理組織診を行ったところ悪性所見はなく TOA と診断した。

TOA は Pseudo-Meigs 症候群を示しえる。画像診断などによる検査で正確な診断ができない場合、開腹手術を行い病理学的な診断を行うことが必要である。

骨盤内腫瘍に胸腹水の貯留を認めた場合には本疾患も考慮すべきである。

Key words: tuboovarian abscess, ovarian abscess, pleural effusion, ascites

近年、超音波検査や CT、MRI 検査など画像診断の進歩により骨盤内腫瘍は開腹手術を行わなくても正確に診断することが可能になってきた。良性の卵巣原発腫瘍に伴い胸腹水が出現し、腫瘍摘出後に胸腹水が消失しその後再貯留を認めない病態は Meigs 症候群と定義される。また原発腫瘍が線維腫、莢膜細胞腫、顆粒膜細胞腫、Brenner 腫瘍以外の骨盤内腫瘍による病態を Pseudo-Meigs 症候群と分類する。これらは 1954 年に Meigs によって定義され Pseudo-Meigs 症候群を呈する骨盤内腫瘍としては現在までに原発性卵巣癌や転移性卵巣癌や線維肉腫、変性子宮筋腫などが報告されている¹⁻⁴⁾。

TOA に伴う Pseudo-Meigs 症候群の報告は過去にない。

今回、術前に胸腹水を伴い Pseudo-Meigs 症候群の病

態を呈した卵巣癌と疑って外科的に切除された卵巣の病理組織学的検索から、胸腹水を伴った TOA と診断された 1 例を経験したので報告する。

I. 症例

患者：51 歳女性。3 回経産 3 経産婦。

現病歴：患者は脳膿瘍切除後の合併症で失語症などの高次脳機能障害により意思疎通が困難となり、施設で生活をしてきた。当院受診日 10 日前に施設で腹部膨満と尿量の減少を指摘され、受診日前日に近医で施行された腹部単純 CT 画像検査で左卵巣癌と診断され、さらなる精査目的のため当院に受診となった。

家族歴・職業歴：特記事項なし。

既往歴：子宮筋腫核出術後 (38 歳)、慢性副鼻腔炎からの脳膿瘍 (39 歳)。

*兵庫県赤穂市中広 1090

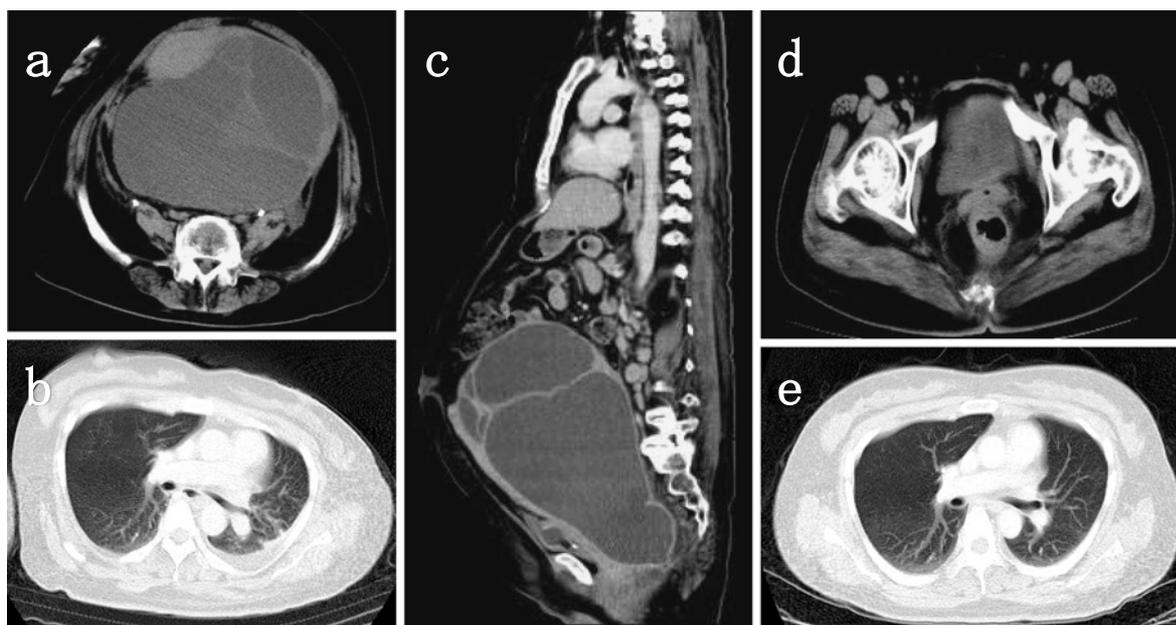


Fig. 1. Computed tomography (CT) images of the preoperative (a, b, c) and postoperative (d, e) findings
 a) Horizontal image taken preoperatively showing an ovarian tumor about 15 cm × 20 cm × 30 cm attached to the posterior uterus wall. The irregular surface of the tumor contains partial thickening of the capsule. The content of the tumor shows solid and cystic patterns. b) Horizontal image of left pleural effusion. c) Sagittal image of the tumor with contrast media showing a multicellular mass with a uniform content and a ring-enhanced wall. d, e) Horizontal images taken postoperatively showing no ascites (d) and no pleural effusion (e).

生活歴：喫煙なし， 飲酒なし。

入院時現症：身長 156 cm， 体重 68 kg， BMI 27.9 kg/m²， 血圧 108/67 mmHg， 体温 37.4℃， 呼吸数 20 回/分， 心拍数 109 回/分・整， SpO₂ 98% (室内気)， 眼瞼結膜に貧血なし， 眼球結膜に黄染なし， 甲状腺腫大なし， 呼吸音 清， 心音 整， 腹部は膨満， 小児頭大で弾性硬の腫瘍を触知し， 軽度の圧痛あり， 筋性防御 (±)， 腸蠕動音 正常， 両側肋骨脊柱角部痛あり， 明らかな膿性帯下なし。

主要な検査所見：Hb 12.1 g/dL， WBC 24,700/μL， Plt 65.8 万/μL， TP 7.7 g/dL， BUN 11.4 mg/dL， Cr 0.61 mg/dL， eGFR 79.7 mL/min/1.73 m²， T-Bil 1.4 mg/dL， AST 44 IU/L， ALT 87 IU/L， LDH 298 IU/L， Na 134 mEq/L， K 3.4 mEq/L， CRP 33.98 mg/dL， HbA1c (NGSP) 5.2%。

尿グラム染色：グラム陰性桿菌 3+， 貪食あり。

尿培養：*Klebsiella pneumoniae* を検出。

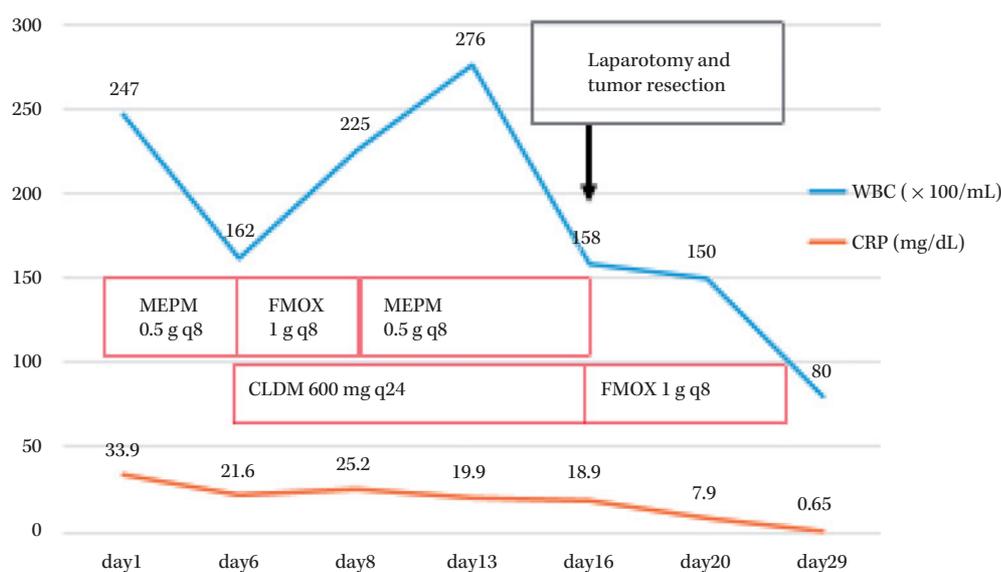
腔分泌物：*Chlamydia* を認めず。

腫瘍マーカー：CEA 0.9 ng/mL， CA19-9 215.5 U/mL， CA125 138.4 U/mL。

入院時胸腹部単純 CT 所見：腹部 CT 検査で子宮

後面に約 15 cm × 20 cm × 30 cm の卵巣原発腫瘍を認めた (Fig. 1a)。表面は不整で被膜の肥厚があり， 腫瘍内部は充実性と嚢胞性が混在していた。また腫瘍によるとと思われる両側腎盂の拡大が認められた。胸部 CT 検査では肺野に明らかな異常所見を認めず， 胸水貯留も認めなかった。

入院後経過：卵巣癌による水腎症と血液検査， 尿検査所見からグラム陰性桿菌による複雑性腎盂腎炎を併発していると判断した。複雑性腎盂腎炎に対し施設入所者という背景から基質特異性拡張型 β ラクターマーゼ産生菌や緑膿菌などをカバーするため， 経験的に meropenem (MEPM) 1.5 g/day の投与を開始し， 入院当日に尿管ステントを泌尿器科に依頼して留置した。尿培養のみの採取で血液培養は実施しなかった。全身状態や炎症反応は改善傾向で尿培養の結果， 感受性良好な *Klebsiella pneumoniae* だったため flomoxef (FMOX) 3 g/day と嫌気性菌の混合感染も考慮し clindamycin (CLDM) 600 mg/day の併用療法に切り替えた。しかし， 入院後 7 日目の血液検査で再度炎症反応の上昇を認めたため， MEPM 1.5 g/day + CLDM 600 mg/day に変更しな



FMOX: Flomoxef, CLDM: Clindamycin, MEPM: Meropenem.

Fig. 2. Clinical course

Initially administered antibiotics were de-escalated at day 6 based on the results of urine culture with an improved inflammatory reaction. However, the inflammatory reaction was exacerbated at day 8. Broader spectrum antibiotics with combination therapy, using MEPM plus CLDM were initiated, but the inflammatory reaction got even worse. An experimental laparotomy was performed on day 16, considering the possibility of either ovarian cancer or TOA. After the operation, the values associated with an inflammatory reaction improved promptly with the disappearance of effusion and ascites, leading to the final diagnosis of Pseudo-Meigs' syndrome due to TOA.

が原因検索にあたった (Fig. 2)。入院 10 日目に造影 CT 検査を行ったところ両側水腎症は改善傾向にあり、卵巣原発腫瘍の大きさは不変で、新たに左胸水と少量の腹水貯留を認めた (Fig. 1b, c)。画像所見から腫瘍は多房性で内容物は均一、壁はリング状に造影効果を認めたため TOA も疑われたが、TOA 発症の誘因となる子宮内操作や子宮内異物、感染症の存在はなく、不正性器出血や膿性帯下も認められず、腫瘍マーカーの上昇や胸腹水の貯留も認め、卵巣癌が Pseudo-Meigs 症候群を来し始めている可能性も十分考えられた (Fig. 1c)。Pseudo-Meigs 症候群を来した卵巣癌、または TOA など良悪性腫瘍いずれの可能性も考慮し、入院 16 日目には保存的治療の限界と判断し試験開腹術を施行した。開腹時、黄色透明の腹水を少量認めたため、採取したが腹水細胞診は陰性だった。左卵巣が腫大して、子宮をダグラス窩から腹側へ持ち上げるように大きくなりその境界は不明で子宮と一塊になっていた。ダグラス窩は腸管と強く癒着し、全体的に膿汁を伴い子宮は漿膜と腸間膜の癒着が認められ、腫瘍の被

膜は被膜内全面に膿汁がこびりついた炎症性被膜だったことから、手術所見では TOA を強く疑う所見であった。開腹ドレナージを施行し生理食塩水で大量洗浄しドレーン挿入後閉腹した。採取した腫瘍の内容液と膿汁の細菌培養検査は陰性で、腹水細菌培養検査も陰性、術後留置していた腹腔ドレーンからの浸出液細菌培養検査も陰性であった。外科的切除卵巣の病理組織学的所見は高度の炎症反応を伴った嚢胞壁と思われる線維性組織が認められフィブリン塊や壊死組織が確認でき上皮成分は認められなかった。卵巣皮膜も出血、炎症を伴った線維性組織であり上皮成分は認められず TOA と診断された。

術後は、経験的に FMOX 3 g/day の投与を行った。経過は順調で、炎症反応は速やかに改善し、胸腹水も消失し再貯留を認めなかったことから最終的に Pseudo-Meigs 症候群の病態を呈した TOA と診断した (Fig. 1d, e)。

術後約 2 週間で FMOX を終了し、入院 21 日目に尿管ステントも抜去した。入院 32 日目に退院となり以後も順調に経過している。

II. 考察

TOA は骨盤腹膜炎が進行した炎症性腫瘍であり、30～40 代の閉経前に好発する⁵⁾。症状としては発熱や膿性帯下が多く、リスク因子として直近の子宮内膜細胞診や子宮腔内避妊器具やタンポン挿入などの子宮腔内処置の施行があげられる⁶⁾。一般的に感染経路は上行感染が多く上行感染以外には虫垂炎などからの二次性発症も報告されている⁷⁾。起因菌は *Escherichia coli* が最多でその他 *Klebsiella*, group B *Streptococcus* や *Bacteroides* など、グラム陰性桿菌、グラム陽性球菌、嫌気性菌が検出されている^{7,8)}。手術中に採取した膿瘍や腹水の細菌検査では、すでに抗菌薬が投与されていることが多いため約半数の症例では細菌が検出されない⁹⁾。細菌検査陽性例の約 3 分の 1 に嫌気性菌である *Bacteroides* が検出されており嫌気性菌を含む混合感染例が多いと考えられる⁹⁾。

治療法としてまず抗菌薬を使用するが、抗菌薬の投与のみによる TOA の治癒率は 67～75% である¹⁰⁾。2015 年の米国 CDC のガイドラインでは、doxycycline と嫌気性菌に有効な CLDM または metronidazole を併用するよう推奨している¹¹⁾。近年、より広域の抗菌薬の開発によって、治療法も外科的治療から保存的治療にかわりつつあるが、重症例や抗菌薬の効果が乏しい症例では手術を選択せざるをえない。手術を選択する基準として抗菌薬投与後 48～72 時間経過しても 1) 発熱の持続、2) 膿瘍の増大、3) 白血球増加の持続、4) 血沈の亢進、5) 破裂が疑われる場合が提唱されている⁷⁾。

TOA に対する手術法には大きく分けてドレナージと開腹による根治術がある。ドレナージは腔壁と膿瘍が隣接している場合には経腔超音波ガイド下で穿刺を行う。開腹手術においてはできるだけ炎症がおさまった時期に行う。ほとんどの症例で周囲組織との癒着が強いためである。術式においては開腹ドレナージ単独から膿瘍核出術、付属器切除術、子宮全摘術+付属器切除までさまざまである。

1957 年 Meigs が胸水および腹水を合併した卵巣線維腫で、腫瘍摘出に伴って胸水・腹水が消失し再発しない症例を Meigs 症候群と定義した。また、卵巣線維腫以外の腹腔内腫瘍に伴って生じる同様の病態を Pseudo-Meigs 症候群とした¹⁾。本症例も腹腔内腫瘍が卵巣線維腫以外で、胸水および腹水を伴い、

腫瘍摘出後速やかに胸腹水が消失し再貯留していないため、Pseudo-Meigs 症候群に相当する。2018 年 1 月 19 日現在で PubMed で検索式を “Pseudo-Meigs syndrome” [All Fields] として検索した限りでは Pseudo-Meigs 症候群は 136 例の報告があるが、TOA に伴う Pseudo-Meigs 症候群の例は検索した範囲では認められず、TOA に伴う Pseudo-Meigs 症候群の報告は過去にない。TOA は卵巣癌などの悪性腫瘍との合併も報告されているが本症例では病理組織診断で悪性所見を認めなかった^{5,6)}。また本患者は胸腹水貯留が生じるような肝疾患、心疾患や腎疾患などの合併症を認めていない。TOA に伴う Pseudo-Meigs 症候群の例は本症例がその第 1 であると考えられる。卵巣腫瘍を認めた場合、卵巣悪性腫瘍と TOA の鑑別には症状、内診・外診所見のほか、超音波検査、CT 検査、MRI 検査が重要になる⁷⁾。内診・外診所見で大量の膿性帯下を認め、超音波検査で腫瘍の内容物を均一の炎症性腫瘍を認めることができれば鑑別は比較的容易である。しかし本症例の場合、既往症の脳膿瘍が原因で失語症や意思疎通の困難を認めており、内診や経腔超音波、MRI 検査に非協力的で行うことができず、TOA に典型的な発熱 (50%)、膿性帯下 (28%)、嘔吐 (26%)、不正性器出血 (21%) などの症状に乏しかった⁷⁾。子宮腔内検査や STD の既往など TOA のリスクファクターも認めなかった⁸⁾。血液データで腫瘍マーカーの高値を認めており、炎症反応の高値に関しては当初その原因として両側水腎症からの腎盂腎炎が考えられていたこと、抗菌薬の投与を行っても腫瘍径が不変であったこと、造影 CT 検査では腫瘍は 10 cm 以上の巨大な多房性で壁は肥厚し造影効果を認め、内部は充実性と嚢泡性が混在し胸腹水の貯留を伴っていたことが卵巣癌に類似していたため、卵巣癌と TOA の鑑別に難渋した。また TOA での胸腹水貯留の報告がなかったことも鑑別が困難であった要因として考えられる。本症例のように卵巣悪性腫瘍だけでなく TOA でも Pseudo-Meigs 症候群を示すことがあるため、全身状態不良や画像上、巨大腫瘍や周囲組織との癒着状態などの理由で手術不能な卵巣癌と即決せずに確定診断ができない場合は開腹手術に踏み切り病理組織診を行う必要がある。卵巣癌など他の卵巣腫瘍との鑑別に難渋した時には開腹手術を行い病理学的診断を行うことがきわめて重要であ

る。

利益相反自己申告：申告すべきものなし。

文献

- 1) Meigs J V: Fibroma of the ovary with ascites and hydrothorax; Meigs' syndrome. *Am J Obstet Gynecol* 1954; 67: 962-85
- 2) 清水谷尚宏, 仙波征太郎, 小宮山学, 畑尾英一, 伊藤昌之, 来生 研, 他: 卵巣明細胞腺癌による pseudo-Meigs 症候群の 1 例。日呼吸会誌 2005; 43: 236-40
- 3) 岩上佳史, 水島恒和, 弓場健義, 山崎芳郎: pseudo-Meigs 症候群を呈した S 状結腸癌異時性卵巣転移の 1 例。日消外会誌 2011; 44: 1462-9
- 4) Oguma T, Yamasaki N, Nakanishi K, Kinoshita D, Mitsuhashi T, Nakagawa S: Pseudo-Meigs' syndrome associated with hydropic degenerating uterine leiomyoma: a case report. *J Obstet Gynaecol Res* 2014; 40: 1137-40
- 5) Granberg S, Gjelland K, Ekerhovd E: The management of pelvic abscess. *Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol* 2009; 23: 667-78
- 6) Protopapas A G, Diakomanolis E S, Milingos S D, Rodolakis A J, Markaki S N, Vlachos G D, et al: Tubo-ovarian abscesses in postmenopausal women: gynecological malignancy until proven otherwise? *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2004; 114: 203-9
- 7) 安達美和, 本郷淳司, 中村圭一郎, 平松祐司, 堀章一郎: 確定診断に苦慮した卵管卵巣膿瘍の 1 例。産婦中四会誌 2004; 52: 174-9
- 8) Landers D V, Sweet R L: Tubo-ovarian abscess: contemporary approach to management. *Rev Infect Dis* 1983; 5: 876-84
- 9) 朝田嘉一, 大森真紀子, 多賀谷光, 和田麻美子, 大木麻喜, 深澤宏子, 他: 当院における過去 10 年間の卵管卵巣膿瘍 62 例に関する検討。関東産婦誌 2011; 48: 405-10
- 10) Goharkhay N, Verma U, Maggiorotto F: Comparison of CT- or ultrasound-guided drainage with concomitant intravenous antibiotics vs. intravenous antibiotics alone in the management of tubo-ovarian abscesses. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2007; 29: 65-9
- 11) Workowski K A, Bolan G A; Centers for Disease Control and Prevention: Sexually transmitted diseases treatment guidelines, 2015. *MMWR Recomm Rep* 2015; 64 (RR-03): 1-137

A case report of Pseudo-Meigs' syndrome due to a tuboovarian abscess

Yuki Tachibana¹⁾, Naohi Isse¹⁾ and Taro Higashida^{1,2)}

¹⁾ Department of General Medicine, Ako City Hospital, 1090 Nakahiro, Ako, Hyogo, Japan

²⁾ Department of Gynecology, Kasai City Hospital

Tuboovarian abscesses (TOAs) represent an advanced pelvic inflammatory disease. We report for the first time a case of Pseudo-Meigs' syndrome caused by a TOA.

A 51-year-old Japanese woman, gravida 2, para 2, was referred to our hospital, by another hospital with a suspected diagnosis of ovarian cancer. Blood exams at our hospital confirmed the high value of inflammatory reaction and tumor markers including CA 19-9 and CA125.

Imaging studies revealed a huge pelvic mass about 15 cm × 20 cm × 30 cm on the posterior wall of the uterus, suspected as being either ovarian cancer or TOA. Antimicrobial therapies were ineffective with the accumulation of pleural effusion and ascitic fluid during the treatment course. Tumor resection under a laparotomy was performed, and histopathologic examination showed no malignant findings, with a final diagnosis of TOA.

In this case, the TOA had caused Pseudo-Meigs' syndrome. It is necessary to carry out a laparotomy operation to make a definitive diagnosis if imaging studies are insufficient to make an accurate diagnosis. TOA should be considered as a cause of Pseudo-Meigs' syndrome when pleural effusion and ascitic fluid accompany any pelvic mass.