

CASE REPORT

先行する子宮腺筋腫術後出現した多発肺結節に対し手術を施行した1例

藤原大樹¹・石橋史博¹・高橋好行¹・
飯田智彦¹・柴 光年¹・廣島健三²

Bilateral Multiple Pulmonary Nodules After Surgery for Uterine Tumors

Taiki Fujiwara¹; Fumihiko Ishibashi¹; Yoshiyuki Takahashi¹;
Tomohiko Iida¹; Mitsutoshi Shiba¹; Kenzo Hiroshima²

¹Department of Thoracic Surgery, Kimitsu General Hospital, Japan; ²Department of Pathology, Tokyo Women's Medical University Yachiyo Medical Center, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Benign metastasizing leiomyoma is a rare disease in which leiomyoma of the uterus metastasizes to the lung despite the benign nature of the tumor. **Case.** A 50-year-old woman with multiple pulmonary nodules had undergone hysterectomy for leiomyoma of the uterus at the age of 36, after twice having undergone myomectomy. She had also undergone a partial right lung resection for a pulmonary nodule at the age of 42. The lung tumor proved to be a hamartoma. We performed a left S⁶ segmentectomy and left S¹⁰ partial lung resection for multiple bilateral pulmonary tumors. The pathological diagnosis was benign metastasizing leiomyoma. We re-examined the histological findings of the uterine tumors; they were all diagnosed as adenomyoma. **Conclusion.** We report a case of pulmonary tumors, diagnosed as benign metastasizing leiomyoma, in a patient with uterine adenomyoma.

(JJLC. 2013;53:64-68)

KEY WORDS — Benign metastasizing leiomyoma, Uterine adenomyoma

Reprints: Taiki Fujiwara, Department of Thoracic Surgery, Kimitsu General Hospital, 1010 Sakurai, Kisarazu, Chiba 292-8535, Japan (e-mail: taiki_ni_kiita@nifty.com).

Received September 10, 2012; accepted February 27, 2013.

要旨 — **背景.** 良性転移性平滑筋腫は、病理組織学的に良性であるにもかかわらず子宮筋腫が肺に転移するまれな疾患である。**症例.** 50歳女性。36歳時に2度にわたり核出術を行った子宮筋腫に対し子宮全摘術を施行した。42歳時に検診にて発見された右肺結節に対し手術を施行し、過誤腫と診断された。その後再度検診にて発見された左右肺結節に対し、胸腔鏡下左S⁶区域切除術およびS¹⁰部分切除術を施行した。肺腫瘍の病理診断はいずれも

良性転移性平滑筋腫であった。過去の子宮腫瘍の病理所見を再検討したが、すべて子宮腺筋腫であった。両者の病理組織像を比較したが、子宮腺筋腫が肺に転移したとは診断できなかった。**結論.** 今回我々は先行する子宮腺筋腫術後に出現した多発肺結節に対し、手術を施行した1例を経験したので報告する。

索引用語 — 良性転移性平滑筋腫、子宮腺筋腫

症 例

症例：50歳女性。

既往歴：高血圧、高脂血症、卵巣嚢腫手術。

現病歴：33歳、36歳時に子宮筋腫核出術、36歳時に子宮筋腫に対し、子宮全摘術を施行した。42歳時に検診に

¹国保直営総合病院君津中央病院呼吸器外科；²東京女子医科大学八千代医療センター病理診断科。

別刷請求先：藤原大樹，国保直営総合病院君津中央病院呼吸器

外科，〒292-8535 木更津市桜井1010(e-mail: taiki_ni_kiita@nifty.com)。

受付日：2012年9月10日，採択日：2013年2月27日。

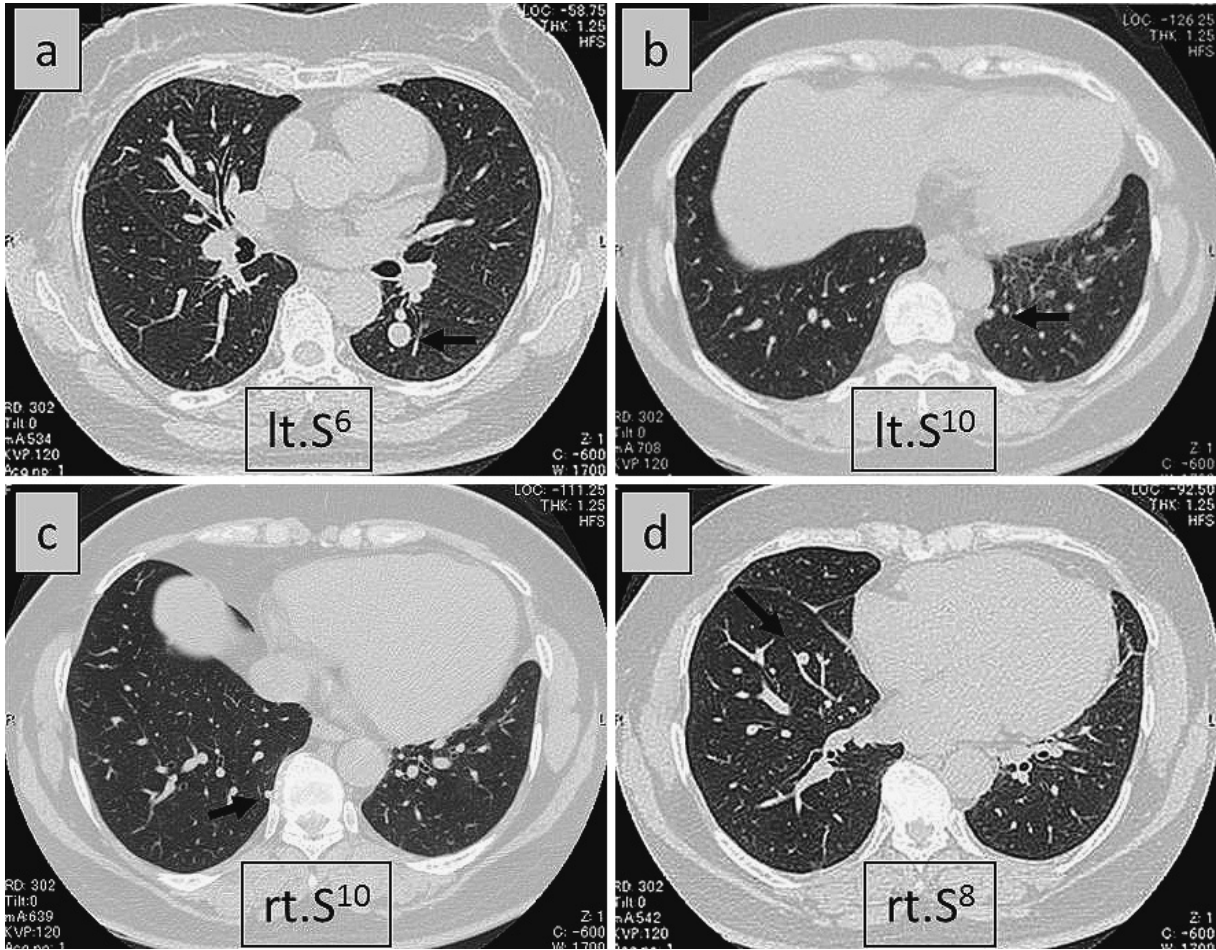


Figure 1. Chest computed tomography (CT) showing multiple pulmonary tumors. The size of the left S⁶ tumor (a) slightly increased over 2 months.



Figure 2. The tumor in the left S⁶: 12×10×10 mm in size with clear borders.

て発見された単発の右肺結節 (S³; 28 mm) に対して、当科で胸腔鏡下右肺部分切除術を施行した。病理診断は過

誤腫であり、悪性所見はみられなかった。術後経過良好であり、一旦終診となった。ところが、49歳時の検診にて胸部異常陰影を指摘され、当院呼吸器内科を受診した。胸部CTでは、左右肺結節がみられたが、FDG-PETでは同部位での異常集積がみられなかったため、多発肺結節であるものの、悪性所見を積極的に疑えず、経過観察の方針となった。2か月後、特に左S⁶肺結節がわずかに増大傾向にあり、悪性腫瘍も否定できないため、精査加療目的に当科紹介となった。

入院時現症：特記事項なし。

血液検査所見：異常なし。

術前胸部CT：左右多発肺結節が存在した。これらは、42歳時の右肺腫瘍手術の際の胸部CTではみられなかった。左S⁶の結節影はわずかに（最大径10 mm→12 mm）増大傾向を示した（Figure 1）。

手術：胸腔鏡下左肺S⁶区域切除術および左S¹⁰肺部分切除術を施行した。S⁶の結節は境界明瞭な径12×10×10 mmの腫瘍であった（Figure 2）。

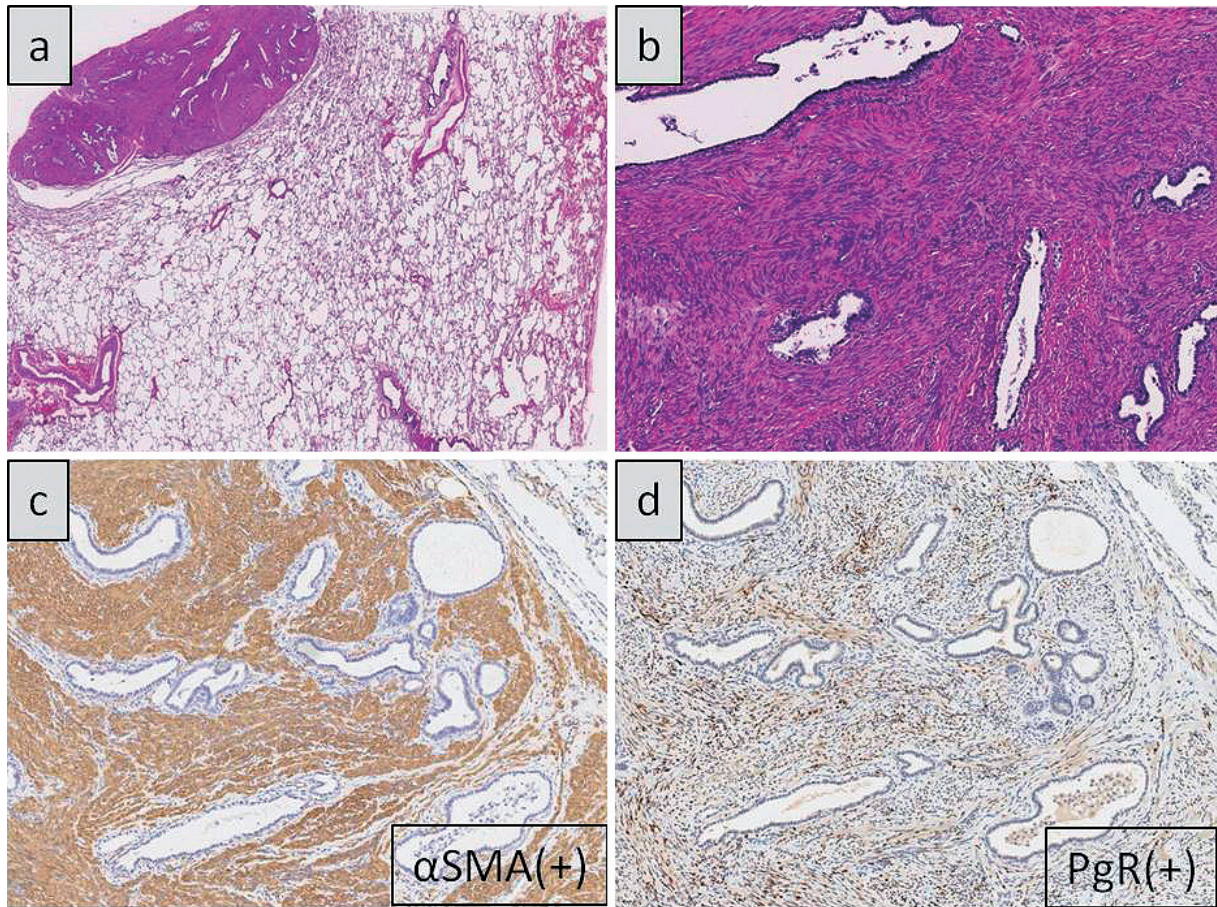


Figure 3. Hematoxylin-eosin staining (**a**, **b**) showing the left S⁶ tumor with spindle cells, lacking atypia or mitosis. Cellularity of the spindle cells is low. There is no tumor necrosis. Immunohistochemical staining shows that the tumor cells are positive for α smooth muscle actin (**c**) and progesterone receptors (**d**).

病理所見：左 S⁶ の肺腫瘍は紡錘形細胞が錯綜し、その中に立方形の細胞が入り組んだ腺腔を形成していた。紡錘形細胞の cellularity は高く、核は腫大し、小型の核小体を認めた。核分裂像は目立たず、壊死はみられなかった。免疫染色において、紡錘形細胞は、 α SMA(+), caldesmon(+), HMB45(-), ER(+), PgR(+)であった。Ki67 標識率は 1% 以下であった。腺腔を形成する細胞は細気管支から腫瘍内上皮に連続しており、CK7(+), TTF-1(+), Napsin A(+), PgR(-)であり、これらは肺由来であると考えた(Figure 3a~3d)。左 S¹⁰ の肺腫瘍も同様であった。以上より、良性転移性平滑筋腫(benign metastasizing leiomyoma) と診断した。

42 歳時肺腫瘍所見：42 歳時の肺腫瘍 (Figure 4a) の病理所見を再検討したところ、今回の手術と同様に良性転移性平滑筋腫であり、免疫染色においても同様の所見であった (Figure 4b, 4c)。

子宮腫瘍病理所見：33 歳時、36 歳時の子宮腫瘍の病理所見を再検討したところ、子宮平滑筋層に存在する結節

は腺腔と少量の内膜間質からなっていた。腺腔に異型性はみられなかった。紡錘形細胞はやや cellularity が高かったが、核分裂像は目立たなかった (Figure 5)。免疫染色において、上皮細胞は、CK7(+), PgR(+), ER(+)であり、紡錘形細胞は、CK7(-), PgR(+), ER(-)であった。以上より、いずれの子宮腫瘍も病理学的には子宮筋腫ではなく、子宮腺筋腫と診断した。組織像が肺腫瘍と一致しないため、これらが肺転移を起こしたとは考えにくい。また、標本内には子宮平滑筋腫はみられたが、cellularity が低く、転移の原因とは考えにくい。

術後経過：術後経過は良好にて退院となった。右肺結節は残存しているが、現在外来にて経過観察中である。

考 察

良性転移性平滑筋腫は、1939 年 Steiner が初めて報告した、病理組織学的には良性であるにもかかわらず、子宮筋腫が肺に転移するまれな疾患である。¹ 肺腫瘍が発見されるまでの期間は一般的に長く、多発肺病変でみつ

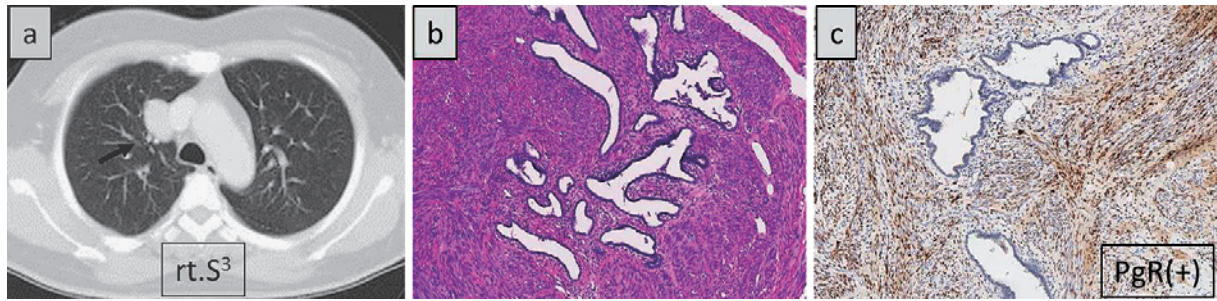


Figure 4. Chest CT showing a single pulmonary tumor in the right S³ (a) at the age of 42; hematoxylin-eosin staining (b) and immunohistochemical staining (c) showing the tumor to be a benign metastasizing leiomyoma.

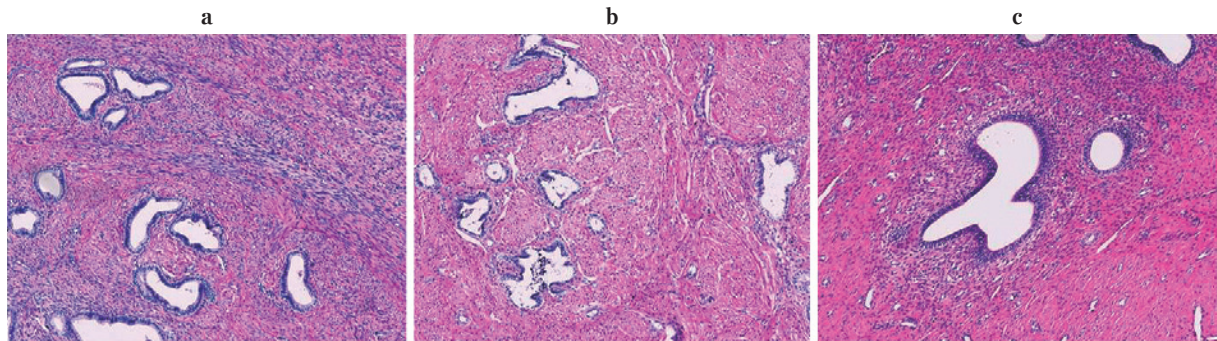


Figure 5. Uterine tumors at the age of 33 (a) and 36 (b, c): tumor-like masses composed of endometrial glands, stroma, and smooth muscle. All tumors were diagnosed as adenomyoma. The pulmonary tumors differ histologically and immunohistochemically from these uterine tumors.

かる症例が多い。² 子宮平滑筋腫と子宮平滑筋肉腫の鑑別は困難なことが多く、Bellらは核分裂像や細胞異型ではなく、凝固壊死の有無が臨床予後を左右すると報告している。しかし、子宮筋腫では、腫瘍内の血行障害による壊死を認めることが少ないため、鑑別は困難なことが多い。³⁴ 良性腫瘍であるにもかかわらず転移を起こすのは、子宮腫瘍自体の良悪性の診断の難しさに起因すると思われる。治療は、外科的切除が最善であるが、多発性病変が多く完全切除できる症例に限られる。プロゲステロン、Gn-RH誘導体、アロマターゼ阻害剤、卵巣摘出などのホルモン療法が有用であるとの報告もみられる。⁵⁶ 予後に関しては、腫瘍の発育速度が遅いこともあり良好とされている。² しかし、病変進行による呼吸不全の報告例もあるため、⁷ 慎重な経過観察が必要である。

本症例の子宮腫瘍は子宮腺筋腫であった。子宮腺筋腫の肺転移の報告はないこと、子宮腫瘍と肺腫瘍の組織像が異なっていることから、子宮腺筋腫の肺転移とは考えにくいと思われる。

子宮手術時には子宮筋腫と診断され、長期間経過良好であったために残存子宮材料や手術記録、カルテなどが前医に残っておらず、当時の状況の詳細の確認や子宮全

体の平滑筋腫の確認を行うことができなかった。子宮平滑筋腫が証明されない benign metastasizing leiomyoma の報告は、我々が調べた限りない。肺腫瘍は、3回の子宮手術の際の検体で確認できなかった子宮平滑筋腫が肺転移を起こした可能性があるとして推測される。

肺原発平滑筋腫との鑑別であるが、Wolffらは、男性例も含む転移性平滑筋腫瘍の肺転移巣の病理学的検討から、腫瘍内の上皮成分はゆっくりとした平滑筋細胞の増殖に取り残された肺組織の上皮細胞であると結論している。一方、肺原発肺平滑筋腫ではこのような上皮成分は含まれず、胸部X線上多くの場合単発性の肺野結節影を呈し転移性腫瘍と鑑別できると報告されている。⁶⁷ 本症例でも病理所見上内部に肺由来の上皮細胞がみられており、肺原発平滑筋腫よりは転移性平滑筋腫瘍であることが推測され、benign metastasizing leiomyoma であると思われる。

結 論

先行する子宮腺筋腫術後に出現した多発肺結節に対し、手術を施行した1例を経験した。過去の標本を検討したが、今回肺転移を起こした子宮平滑筋腫を特定する

ことができなかった。本症例のようにまれな疾患ではあるが、子宮筋腫の既往のある女性の肺病変では、本疾患の可能性を念頭におく必要があると考えられた。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

謝辞：肺腫瘍の病理診断をしていただいた当院病理診断科西原弘治先生、石橋康則先生、子宮腫瘍診断の際にご助言をいただいた千葉大学大学院医学研究院病態病理学清川貴子先生、十数年前の貴重な子宮腫瘍標本をお貸しいただいた株式会社江東微生物研究所千葉支所の中村和昭様、野田智也様に深謝いたします。

REFERENCES

1. Steiner PE. Metastasizing fibroleiomyoma of the uterus: report of a case and review of the literature. *Am J Pathol.* 1939;15:89-109.
2. 松田佳也, 八柳英治, 佐藤啓介. 子宮筋腫多発肺転移の1例. *日本胸部臨床.* 2011;70:89-94.
3. 福井麻里子, 小池輝明, 大和 靖, 吉谷克雄, 本間慶一, 廣島健三. 良性転移性平滑筋腫と子宮平滑筋肉腫の肺転移の鑑別が困難であった1症例. *肺癌.* 2010;50:377-378.
4. Bell SW, Kempson RL, Hendrickson MR. Problematic uterine smooth muscle neoplasms. A clinicopathologic study of 213 cases. *Am J Surg Pathol.* 1994;18:535-558.
5. 井上孝実, 野村昌男. Gonadotropin-releasing hormone (GnRH) agonist が著効を示し Metastasizing leiomyoma が強く疑われる1例. *産婦人科治療.* 2003;86:892-894.
6. 中村秀範, 塚本東明, 佐々木秀樹, 青山克彦, 山田昌弘, 伊藤道生, 他. 卵巣摘出術により肺転移巣が著明に縮小した転移性子宮平滑筋腫 (metastasizing fibroleiomyoma of the uterus) の1例—肺胞領域に平滑筋増殖を示す病態の鑑別診断—. *呼吸.* 1989;8:1113-1119.
7. Wolff M, Silva F, Kaye G. Pulmonary metastases (with admixed epithelial elements) from smooth muscle neoplasms. Report of nine cases, including three males. *Am J Surg Pathol.* 1979;3:325-342.