

症例報告

腹腔鏡手術を施行したUterine Adenomatoid Tumorの一例及び
Adenomatoid tumorを疑った変性子宮筋腫の一例市立福知山市民病院 産婦人科¹⁾京都府立医科大学 産婦人科²⁾奥田知宏¹⁾、吉岡 崇²⁾、秋山 誠²⁾、山下貞雄¹⁾Successful laparoscopic surgeries to a uterine adenomatoid tumor and
a uterine leiomyomaTomohiro Okuda¹⁾, Takashi Yoshioka²⁾, Makoto Akiyama²⁾, Sadao Yamashita¹⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Fukuchiyama City Hospital¹⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Kyoto Prefectural University of Medicine²⁾

Abstract:

Laparoscopic surgery is a valuable tool in the definitive diagnosis and treatment of benign uterine tumors. Here we report two cases diagnosed as benign uterine tumors by laparoscopic surgery: the first is an adenomatoid tumor that was suspected preoperatively as a uterine leiomyoma; the second is a uterine leiomyoma that was suspected preoperatively as an adenomatoid tumor.

Cases:

Case 1: A 63 year-old woman presented to our hospital complaining of lumbago. Uterine myoma was suspected and ultrasound and MRI were performed. A cystic uterine tumor suggesting benign uterine leiomyoma was discovered. However, malignancy could not be ruled out, therefore, the patient consented to LAVH (laparoscopic assisted vaginal hysterectomy). Upon removal of the patient's uterus, macroscopic examination of the tumor was strongly suggestive of uterine leiomyoma. The specimen was sent to pathology; microscopic examination and immunohistological testing provided the definitive diagnosis of benign adenomatoid tumor.

Case 2: A 44 year-old woman presented to our hospital for periodic examination of a uterine myoma that she had been diagnosed with several years ago. MRI was performed and myoma nodule was found. To rule out malignancy, a diagnostic and therapeutic laparoscopic assisted myomectomy (LAM) was recommended. LAM was chosen because the tumor surface appeared as a usual myoma nodule. Final pathology findings on immunohistochemical study of the surgical specimen confirmed the diagnosis of uterine leiomyoma.

Conclusion:

Laparoscopic surgery provides many advantages in clinical gynecological practice. We stress the importance of laparoscopic surgery in preventing misdiagnosis, and in providing definitive diagnosis and treatment in cases of benign gynecologic tumors, including the rare uterine adenomatoid tumor presented herein. We recommend laparoscopic surgical intervention particularly in cases where various imaging studies including MRI, CT, and sonogram, are incompatible with or unable to confirm benign tumor origin.

Key Words: adenomatoid tumor, laparoscopic surgery, uterine leiomyoma

【要 旨】

臨床経過から悪性腫瘍は考えにくいですが、画像上、子宮筋腫と診断できず、腹腔鏡手術を施行した、

子宮体部に認められたadenomatoid tumorの1症例とadenomatoid tumorと鑑別を要した変性子宮筋腫の1症例を報告した。術中所見はともに子宮筋腫と診断し、最初の症例では子宮全摘術

(LAVH)、次の症例では、筋腫核出術 (LAM) を施行した。摘出標本の組織病理診断は、HE染色によってともにadenomatoid tumorと診断されたが、免疫組織化学的検査を追加して、それぞれadenomatoid tumor、及び変性子宮筋腫症例の最終診断を得た。

【序 言】

Adenomatoid tumorは子宮、卵巣などの生殖器に好発するまれな良性腫瘍である。通常、子宮筋腫などの手術時に偶然発見されることが多い。著者らは、今回MRI撮影にて、子宮筋腫と診断されたが、腹腔鏡下手術にて摘出された組織が、adenomatoid tumorであった1症例を経験した。また最近、adenomatoid tumorを疑ったが、摘出標本の最終病理診断は変性子宮筋腫であった1症例を経験したので、併せて報告する。

【症 例 1】

63歳女性 2経妊2経産。

月経歴：閉経50歳

既往歴：特記すべきことなし

現病歴：腰痛にて当科外来受診。超音波診上、径5 cm大の嚢胞性変性を強く認める腫瘍性病変を子宮底部に認めた (図1)。以前から子宮筋腫を指摘されていたが、悪性腫瘍も考慮し、造影MRIを施行した。MRIの信号上からは嚢胞性変性を伴う子宮筋腫の所見に合致するが、造影MRIでは内部に不均一に造影される部分が認められ、悪性所見が完全に否定できなかつた (図2)。しかし、臨床経過からは悪性の可能性は低いと考え、手術は、腹腔鏡手術を選択した。

(入院時身体所見)

身長160cm 体重58kg BMI 28.1

(血液検査所見)

WBC 10560/ μ l Hb 13.9g/dl Ht 42.5% Plt 33.7 \times 10⁴/ μ l LDH 330IU/L CA125 142.4U/ml SCC1.1ng/ml CEA 0.9ng/ml CA19-9 12.9U/ml
子宮頸部細胞診class II 子宮内膜細胞診class II

【手術所見及び術後経過】

全身麻酔下に気腹法にて施行した。臍窩からオープン法にて腹腔内に至り12mmトロカールを挿入し、さらに左右下腹部に5 mmトロカールを挿入した。子宮底部に白色調の5 cm径の筋腫様の腫瘤を認めた (図3⇐)。両側付属器も正常であり、腹腔内に浸潤性の病変も認めず、良性の子宮腫瘍病変 (子宮筋腫) と診断し、腹腔鏡下に両側円靭帯、卵管、卵巣固有靭帯を切開、膀胱子宮靭帯を切断し、通常に手順に従ってLAVH施行。手術時間 1時間38分 出血10ml。摘出子宮は89g。摘出した腫瘍の肉眼像は、白色調の境界明瞭な結節であり、出血や壊死巣は認めなかつた (図3)。術後経過良好にて術後5日目退院。

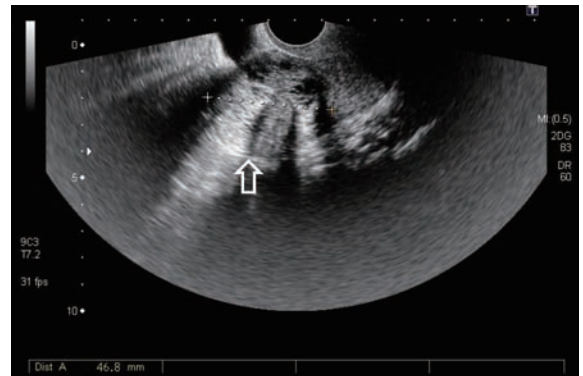


図1 初診時 超音波所見
超音波診上、径5 cm大の嚢胞性変性を強く認める腫瘍性病変を子宮底部に認めた。



【T1強調画像 矢状断】

【T2強調画像 矢状断】

【造影後脂肪抑制併用T1強調画像】

図2 MRI

病変は、T1強調画像では筋層よりも低信号で、T2強調画像では著明な高信号が主体であるが、一部造影効果を伴った充実性成分を認める低信号領域を認めた。

病理組織所見は、HE染色では、上皮様、内皮様からなる大小の管腔構造が密に増生しており、間質性は乏しく、adenomatoid tumorが疑われた。免疫組織化学的検査を行ったところ、管腔構造を示す細胞はAE1/AE3陽性、Calretinin陽性、CD34陰性であることから、adenomatoid tumorと最終診断された（図4）。

【症例 2】

44歳女性 1経妊1経産。既往歴：なし
分娩歴：子宮筋腫合併妊娠にて42歳 33週で1714g
女兒を早産。

現病歴：早産後、子宮筋腫に伴う随伴症状もなく、外来管理していたが、筋腫の軽度増大を認めたため（超音波診上、長径6.5cm大に増大した筋腫を子宮底部に認めた。（図5⇨）。MRIを撮影した（図6）。MRIでは多発子宮筋腫と考えられた。ただし、子宮底部に発育した筋腫はT1強調にて軽度高信号を認め、もしそれが出血成分を主体としていけば、悪性の可能性を否定できないと考えた。造影MRIでは造影効果は乏しく、赤色変性をきたした子宮筋腫を疑った。本人希望は腫瘍核出術であり、臨床経過からは悪性の可能性は低いと思われ、腹腔鏡手術を選択した。

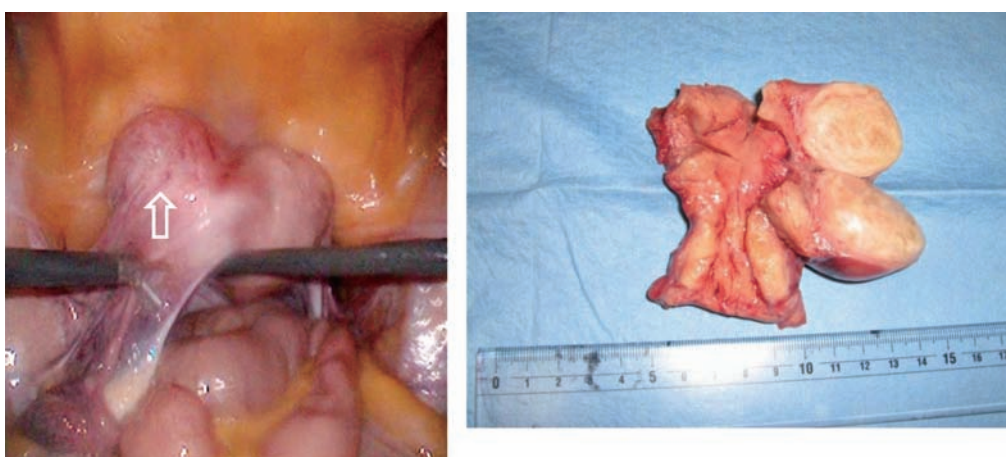


図3 術中所見、及び摘出標本
子宮底部に白色調の5cm径の筋腫様の腫瘍を認めた。両側付属器も正常であり、良性の子宮腫瘍病変（子宮筋腫）と診断し、LAVHを施行した。摘出した腫瘍の肉眼像は、白色調の境界明瞭な結節であり、出血や壊死巣は認めなかった。

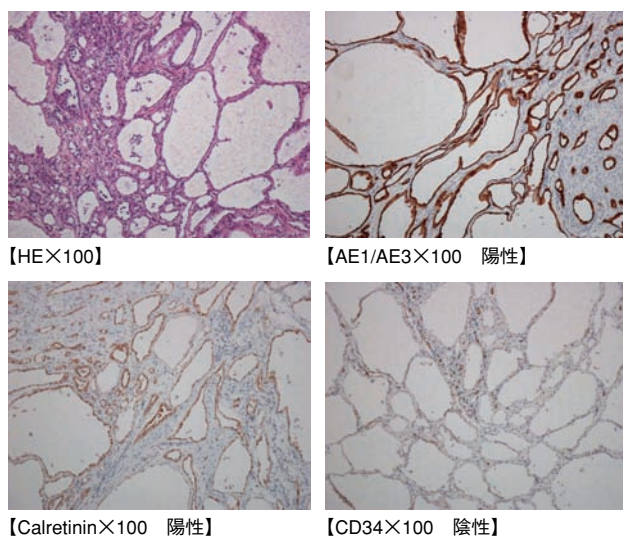


図4 病理組織所見
HE染色、免疫組織化学検査（AE1/AC3、Calretinin陽性、CD34陰性であった。CD34は間質の血管内皮に陽性を示すが、管腔構造を示す腫瘍細胞は陰性であった。

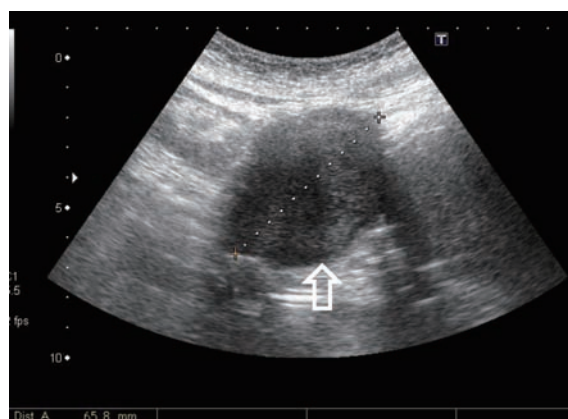


図5 超音波所見
子宮底部に6.5cmの筋腫と思われる腫瘍を認めた。



【T1強調画像 矢状断】

【T2強調画像 矢状断】

【造影後脂肪抑制併用T1強調画像】

図6 MRI

子宮底と連続性を持つ不均一な信号を呈する腫瘤を認め、子宮筋腫を疑う。T1で軽度高信号の部分が多く、T2強調画像では著明な高信号も認める。脂肪抑制T1強調では、不均一に高信号を呈し、辺縁の充実性成分を含めて造影効果は乏しく、脂肪変性をきたした筋腫を第一に疑った。

(入院時身体所見)

身長162.5cm 体重55.4kg BMI 21.0

(血液検査所見)

WBC 4570/ μ l Hb 11.1g/dl Ht 35.3%

Plt 22.4×10^4 / μ l LDH 174IU/L

子宮頸部細胞診class II

【手術所見及び術後経過】

型のごとく全身麻酔、開脚位として、臍窩からオープン法にて腹腔内に至り12mトロカールを挿入し、さらに左右下腹部に5mmトロカールを挿入した。大網の癒着を剥離した後、腹腔内を観察。子宮底部から発育する腫瘍は白色様で、出血や壊死を認めず、子宮筋腫と思われた。また子宮筋層内及び漿膜下にも1cm大の筋腫を2個認めた(図

7⇨)。両側付属器には異常を認めなかった。恥骨上部に4cmの横切開を加え、ラップディスクを挿入、通常の手順に従ってLAM施行。手術時間2時間1分 出血38ml。術中核出操作では、腫瘍と正常筋層の境界も明瞭であった。摘出した子宮底部の腫瘍の肉眼像は白色調の結節であり、腫瘍断面は黄色変性を伴っていた。またその他1cm大の筋腫も白色充実性結節で、周囲組織とも境界明瞭であった(図7)。術後経過良好にて術後5日目退院。病理組織所見は、HE染色では、平滑筋成分、線維性成分からなる、比較的豊富な間質を背景に大小の管腔様構造物が認められた。症例1と同様にadenomatoid tumorを疑ったが、calretinin陰性であり、adenomatoid tumorは否定された(図8)。

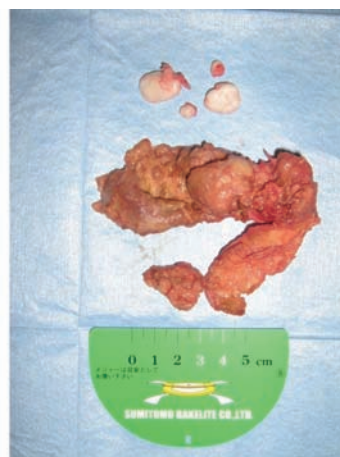
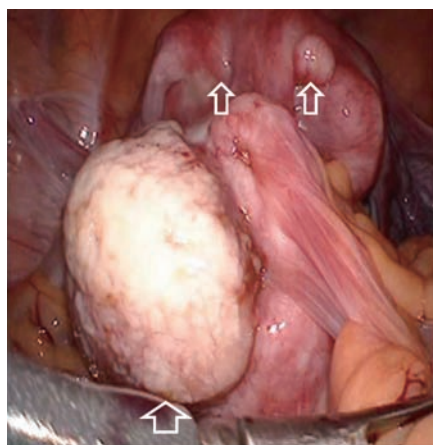


図7 術中所見、及び摘出標本

子宮底部から発育する腫瘍は白色様で、出血や壊死を認めず、子宮筋腫と思われた。また子宮筋層内及び漿膜下にも1cm大の筋腫を2個認めた。両側付属器には異常を認めず、LAMを施行。腫瘍の肉眼像は白色調の結節であり、腫瘍断面は黄色変性を伴っていた。また1cm大の筋腫は白色充実性結節であった。

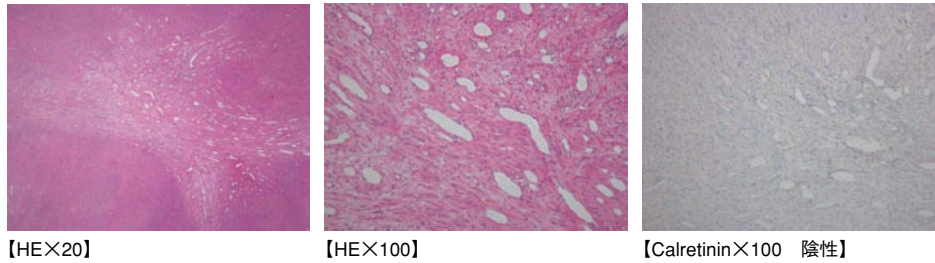


図8 病理組織所見

HE染色にて、平滑筋成分、線維成分からなる、比較的豊富な間質を背景に大小の管腔様構造物が認められた。症例1と同様にadenomatoid tumorを疑ったが、免疫組織化学によりcalretinin陰性であり、adenomatoid tumorは否定された。

【考 察】

Adenomatoid tumor (腺腫様腫瘍)は子宮、卵管、卵巣、睪丸、副睪丸等主に男女の生殖器に限局して発生する稀な良性腫瘍である¹⁾。

Adenomatoid tumorという疾患名は1945年GoldenとAshにより提唱され²⁾、今日に至っている。以前はその形態学的類似性からリンパ管腫、腺筋腫、血管腺様腫瘍、中皮腫など報告者によってさまざまに呼ばれていた^{3,4)}。Adenomatoid tumorという疾患名はあいまいな呼称であり、それは主に腫瘍細胞の起源が確定されていないことと関連がある。組織起源については、血管内皮細胞由来説と漿膜の表面を被う中皮細胞由来説の2つが並立していたが、近年の電顕的、免疫組織学的研究により、中皮細胞由来説がほぼ定説化するに至っている^{5,6)}。中皮細胞のマーカーとして近年用いられるようになったCalretininの免疫組織化学的検査はこれらの鑑別診断に有用であるとされる⁷⁾。症例1ではCalretininの発現により、adenomatoid tumorと診断され、症例2ではCalretininの発現を認めず、最終的に赤色変性の強い平滑筋腫と診断された。

Adenomatoid tumorに関してはまだ多くの未解決の問題が残されている。女性では子宮、卵管にほとんど限局しており、子宮筋腫などの手術標本で偶然発見されることがほとんどであり、中皮細胞由来にもかかわらず、胸膜や心外膜にほとんど発生しない。本腫瘍の発生がアスベスト暴露と関連することを示すデータもない。増殖能が弱く、臨床的にほとんど無症状に経過し、予後良好である点で、中皮腫と大きく異なる。本腫瘍は子宮の漿膜下に存在することが特徴であり、Quigleyらの報告では全ての腫瘍が漿膜からの深さ5mm以内に存在しており、腫瘍細胞と漿膜中皮細胞との間に移行像も認められている⁸⁾。Quigleyらは腫瘍組

織構築の形態学的特徴から、1)腫瘍細胞が索状配列を示し管腔形成に乏しいsolid type 2)小型の管腔から成るadenoid type 3)大型の管腔から成るangiomatoid type 4)嚢胞が主体となったcystic typeの4型に分類している。しかし、これらの増生パターンは混在することが多く、かつ本腫瘍が良性腫瘍のためか、亜型分類はあまり使用されていない⁹⁾。

肉眼的所見は、灰白色、弾性硬、充実性の腫瘍で、平滑筋腫に類似した結節性の病変である。平滑筋腫に比べて境界が不明瞭な点が肉眼的鑑別とされているが¹⁰⁾、Dietterleらは肉眼のみではadenomatoid tumorと平滑筋腫は鑑別困難と述べている¹¹⁾。今回の症例1では、腹腔鏡所見では白色調の境界明瞭な結節であり、出血や壊死巣も認めず、良性腫瘍(子宮筋腫)と判断し、肉眼所見も平滑筋腫に類似した結節性の病変であり、子宮筋腫と思われた。症例2も同様の所見で、出血や壊死等、悪性所見を示唆する所見は認めず、子宮筋腫と判断した。

前述した以外の特徴として、adenomatoid tumorは固有間質に乏しく、筋層内に浸潤性に拡がり、周囲との境界が不明瞭な症例があるなど、通常の良性腫瘍とは異なる組織学的性状を示す。Adenomatoid tumorの病理診断は通常HE染色から容易であるようだが、周囲組織に浸潤するような増殖パターンを示すことから、時に腺癌の転移、類上皮性血管内皮細胞腫などの鑑別が問題となることがある¹²⁾。自験例のHE染色では症例1では、腺腔が拡張して血管腫様の像を示すangiomatoid typeであるadenomatoid tumorと診断し、免疫組織化学的検査を追加し確定診断を得た。症例2は一見比較的豊富な間質を背景に大小の管腔様構造物が認められ、adenoid type様のadenomatoid tumorと診断されたが、免疫組織化学的検査を追加することで変性の強い子宮筋腫と

診断可能となった。

Adenomatoid tumorは、悪性の報告はなく、一般的に経過観察でよいとされているが¹³⁾、術前に診断された症例はこれまで報告がない¹⁴⁾。MRI所見に関する報告も少なく、Mitumoriらは、angiomatoid typeについて、子宮筋層内腫瘍でT1強調画像にて筋層と等信号、T2強調画像で低信号を呈し、造影T1強調画像にて濃染され、子宮筋腫と鑑別が困難であったと報告している¹⁵⁾。Kimらはcystic typeについて、T1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号を示した子宮由来の多胞性腫瘍として報告しているが¹⁶⁾、術前診断は極めて難しいと思われる。自験例（症例1）のMRIをretrospectiveに読影してみたところ、病変は子宮体部左側に連続性を持ち、T1強調画像では筋層よりも低信号で、T2強調画像では著明な高信号が主体であるが、一部造影効果を伴った充実性成分を認める低信号領域を認める。出血壊死を伴えば、通常は悪性疾患等を考慮するが、嚢胞性病変が主体であり、頻度上、嚢胞変性を伴う子宮筋腫を疑った。

【結 語】

塩田らの報告¹⁷⁾にみる如く、当科も画像診断の発達により良性疾患である子宮筋腫は保存的に治療することが多くなった。子宮筋腫は多彩な画像所見を呈し、子宮悪性腫瘍や転移性腫瘍、ならびに卵巣腫瘍と鑑別を要することも多い。時には本症例のような稀な腫瘍であるadenomatoid tumorに遭遇することもある。画像診断に疑問が残るようであれば、確定診断のため手術による病理組織診断に進むべきで、かつ、臨床経過から良性を強く疑う症例に対しては腹腔鏡手術を選択することは有意義であると考えられた。

本論文の要旨は第50回日本産科婦人科内視鏡学会において発表した。

参考文献

- 1) 森脇昭介、杉浦 甫：Adenomatoid tumorと鑑別すべき病変 取扱い規約に沿った腫瘍鑑別診断アトラス 子宮体部（第2版）、1999；210-212、文光堂。
- 2) Golden A, Ash JE: Adenomatoid tumor of genital tract. American Journal of Pathology 1945; 21: 63-79.
- 3) 小林誠一：子宮Adenomatoid Tumorの病理組織学的研究—特に組織発生について—、日産婦誌、1985；37：1833-1840。

- 4) 宮地 徹、森脇昭介、桜井幹己：腺腫様腫瘍 adenomatoid tumor 産婦人科病理学診断図譜（第3版）、1998；339-342、杏林書院。
- 5) Stephenson TJ, Mills PM: Adenomatoid tumours: an immunohistochemical and ultrastructural appraisal of their histogenesis. J Pathol 1986; 148: 327-35.
- 6) Suzuki T et al: Adenomatoid tumor of the uterus. Ultrastructural, histochemical, and immunohistochemical analysis. Arch Pathol Lab Med 1985; 109: 1049-51.
- 7) Doglioni C, et al: Calretinin: a novel immunocytochemical marker for mesothelioma. Am J Surg Pathol 1996; 20: 1037-46.
- 8) Quigley JC, Hart WR: Adenomatoid tumors of the uterus. Am J Clin Pathol 1981; 76: 627-635.
- 9) 岩崎琢也、他：子宮adenomatoid tumorの臨床病理学的研究、病理と臨、1987；5：905-913.
- 10) 岩永 彩、他：子宮体部に認められたadenomatoid tumorの1例—免疫組織化学を用いた病理組織学的検討—、IRYO、2004；58：569-572.
- 11) Dietterle S, et al: Adenomatoid tumor of the uterus—2 case reports. Zentralbl Gynakol 1997; 119: 82-5.
- 12) 清家彩花、本田知子、新宅雅幸：子宮adenomatoid tumorにおけるcalretininとpodoplaninの発現：免疫組織化学的研究、臨床検査、2007；51：1139-1143.
- 13) 金澤秀次、他：MRI上悪性卵巣腫瘍と鑑別を要した子宮cystic adenomatoid tumorの1例、日本医放会誌、2004；64：57-59.
- 14) 浜本鉄也、他：子宮のadenomatoid tumorの11自験例、病理と臨、2001；19：667-671.
- 15) Mitsumori A, et al: MR Appearance of Adenomatoid Tumor of the Uterus. J Comput Assist Tomogr 2000; 24: 610-613.
- 16) Kim JY, et al: Cystic Adenomatoid tumor of the Uterus. AJR 2002; 179: 1068-1070.
- 17) 塩田 充、星合 昊：腹腔鏡下子宮全摘術、臨婦産、2008；62：11-15.