症例

子宮筋腫13年後、両側肺に発生した多発性平滑筋腫
(benign metastasizing leiomyoma) の1例

松井 寛, 水野 武郎, 佐野 正明, 小林 徹, 春日井敏夫*

要 旨

53歳の女性に発症した両側性多発性肺平滑筋腫の1例を報告する。患者は40歳の時、子宮筋腫にて子宮全摘術を受けており、今回住民検診で胸部X線両側肺に多発性結節影を指摘された。手術により触診可能な全ての腫瘍計13個を摘出した。病理組織学的には良性の平滑筋腫と診断され、以上より、いわゆる benign metastasizing leiomyoma であると考えられた。Benign metastasizing leiomyoma の報告はまれであり、本邦では我々の知り得た限りでは自験例を含め7例であった。その成因については、low grade malignancy の平滑筋肉腫の可能性も否定できず、十分な follow up が必要である。

索引用語：多発性平滑筋腫, 肺平滑筋腫, 子宮筋腫
benign metastasizing leiomyoma, pulmonary leiomyoma, myoma uteri

はじめに

子宮筋腫の既往があり、その転移を疑わせる平滑筋腫が肺に発生する、いわゆる benign metastasizing leiomyoma の報告は稀である。最近我々は、53歳の本症を経験した。40歳時に、子宮筋腫にて子宮全摘術を受けており、今回、住民検診で胸部X線両側肺に多発性結節影を指摘された。手術により触診可能な全ての腫瘍計13個を摘出し、現在術後8カ月間、胸部X線上異常を認めていない。本症に関し、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例：53歳 女性

主 訴：胸部異常陰影

家族歴：特記すべきこと無し

既往歴：13年前(40歳時)子宮筋腫にて子宮全摘術をうけた。15年前より高血圧、1年前より糖尿病があり近医通院中である。

現病歴：平成2年2月6日、職場の検診にて胸部X線上異常陰影を指摘され、3月29日当院呼吸器科に紹介入院となった。

入院時所見：全身状態良好であり、呼吸音・心音及び他の理学的所見にも異常を認めなかった。血液一般・生化学検査に異常はなく、腫瘍マーカーも正常範囲内であった。肺機能は正常範囲内であり、また、心電図にも異常を認めなかった。

胸部X線所見 (Fig. 1)：胸部X線では右 S4 に16×12 mm, S6 に9×8 mm, 左 S1 + 2 に11×10 mm, S9 に9×8 mm の類円形、比較的境界明瞭な結節影を認める。

胸部 CT 所見 (Fig. 2)：両側肺に数個ずつ大小不同の陰影を認める。いずれも血管の集束や胸膜の引き込みは認められない。

入院後経過：組織診断を得るために、経気管支的擦過細胞診を行ったが、診断が得られなかった。次に、CT ガイド下で経皮穿刺生検を行

聖隷三方原病院 呼吸器外科

*現 名古屋市立大学 第二外科

原稿受付 1991年7月1日

原稿採択 1991年8月27日

Fig. 1 Chest roentgenogram film shows four nodular opacities in both lung fields.

Fig. 2 Chest computed tomography shows tumors.

Fig. 3 Macroscopic appearance of resected tumor.

ったが、これも確診を得るには至らなかった。レントゲン像の所見より他臓器からの転移性肺腫瘍を疑い消化管・骨盤腔内臓器の精査を行ったが、いずれも異常は認められなかった。そこで、子宮筋腫の既往があること、両側性多発性で転移性を疑わせること、及び以前我々が経験した Benign metastasizing leiomyoma と臨床経過が類似していることなどより、子宮筋腫の肺転移と術前診断し、5月15日右開胸術を施行した。

手術所見：触診にて、S2, S4, S6, S8 に腫瘍を認めたため、まず S4 を腫瘍を含めて部分切除し、術中凍結標本による迅速診断で平滑筋腫との診断を得、S6 の区域切除、S2・S8 の腫瘍核出術を追加した。摘出した腫瘍は球形で表面平滑・充実性で剖面は乳白色であった (Fig. 3)。

病理組織所見 (Fig. 4)：平滑筋の増殖からなる良性の平滑筋腫で、肉腫の所見は全く認められなかった。

右肺に認められた腫瘍はすべて切除可能であったため、対側の腫瘍も切除すべきであると考え、右肺の術後2週目に左肺腫瘍核出術を施行した。

手術所見：触診にて上葉に5個、下葉に4個の米粒大から小指頭大の腫瘍を認め、全て核出した。

病理組織所見 (Fig. 5)：右側と同様に良性の平滑筋腫であったが、わずかに核分裂像も認められた。

また、腫瘍のエストロゲンレセプター、プロゲステロンレセプターは共に陽性であったが、ホルモン療法は施行しなかった。

術後8ヵ月後の現在、胸部X線上異常なく、外来で follow up 中である。

Fig. 4 Histological findings. (HE, ×100) (first operation)

Fig. 5 Histological findings. (HE, $\times 400$) (second operation)

考 察

いわゆる benign metastasizing leiomyoma は1939年に Steiner¹⁾が36歳の女性で、子宮に良性平滑筋腫を多発し、肺に線維筋性転移巣が多発した症例を報告して以来、種々の名称で報告されてきたが、本邦での報告例はまれで、われわれの知り得た限り本例を含めて7例であった。²⁻⁷⁾

本症の成因については、

- (1) 良性平滑筋腫の転移
- (2) low grade malignancy の平滑筋肉腫の転移などが考えられており、これらが性ホルモン依存性により平滑筋腫性増殖をされるとされている。

ホルモン依存性については、肺平滑筋腫からエストロゲンレセプターが発見されており⁸⁾、子宮平滑筋腫の発育にはエストロゲンが関与していることから考えても、十分支持できる。また、子宮および片側卵巣摘出により一時的に緩解した症例⁹⁾、閉経後に腫瘍の増大が弱くなった症例¹⁰⁾、経口避妊薬の常用による肺平滑筋腫の発生例¹¹⁾などの報告も肺平滑筋腫のホルモン依存性を裏付けている。本例でも、エストロゲンレセプター、プロゲステロンレセプターが共に陽性であり、ホルモン依存性と考えたが、術

前にホルモン療法は行なわなかった。

本症を実は low grade malignancy の平滑筋肉腫の転移であるという説もあり、Wolffら¹²⁾によれば、病変が多発性であること、肺病変による死亡例があること、わずかでも核分裂像が散見されることなどより、良性とみえる肺病変も実は low grade malignancy の平滑筋肉腫の転移であると報告されているが、本例も組織学的に核分裂像をわずかではあるが認めており、low grade malignancy の平滑筋肉腫であった可能性を否定することは出来ない。しかし、13年前の子宮筋腫手術時の標本を入手できなかったためにこれ以上の検索は不能であった。

本症の治療は、上記のことも考慮に入れ、手術を第一選択にすべきである。今回われわれは、以前に同様な症例を経験したことがあるため、術前に本症を疑い、積極的に両側多発転移巣の切除をおこなった。また、性ホルモン依存性の症例にはホルモン療法が有効であるという報告もある¹³⁾が、われわれが以前経験した症例⁶⁾では腫瘍のエストロゲンレセプターは偽陽性、プロゲステロンレセプターは陽性であったにもかかわらず、抗エストロゲン剤によるホルモン療法は無効であり、腫瘍は増大した。結局、本症に対する治療法としては、一般に経過も長く切除による根治性も十分期待できるので、まず第一

義的には, 積極的な切除をおこない, その上で, 術後の経過によってはホルモン療法を考慮するべきと思われる。

ま と め

われわれは, 子宮筋腫の既往があり両側多発性の肺平滑筋腫, いわゆる Benign metastasizing leiomyoma の 1 例を経験した。組織学的には良性であったが, 摘出標本の一部に核分裂像もみとめられ low grade malignancy の平滑筋肉腫の転移であった可能性も完全には否定出来ない。今後十分な follow up が必要であると思われる。

文 献

- Steiner P: Metastasizing fibroliomyoma of the uterus. Report of a case and review the literature. *Am J Pathol* **15**: 89-109, 1939.
- 林 周一, 湯浅 昂, 亀森秀明, 森 碧, 黒沢孝夫: 肺平滑筋腫の 1 治験例. *胸部外科* **13**: 290-293, 1960.
- 飯田 稔, 柿本祥太郎, 横山和敏, 森本英夫, 内田 実, 黒田克彦, 武内敦郎, 北沢明人, 茂左敏司: 興味ある両側多発性平滑筋腫の 1 例. *肺癌* **16**: 168, 1976.
- 河端美則, 中島由規, 小山 明, 猪又宏治, 岩井和郎: 低悪性度の子宮平滑筋肉腫の肺転移 (いわゆる metastasizing leiomyoma) が考えられた fibrous leiomyoma. *日胸疾会誌* **20**: 1230-1235, 1982.
- 内藤 隆, 金子 昇, 渡辺昌平, 大村秀樹, 橋爪一光, 半沢 僑, 和田源司, 岡本一也: 悪性転移性肺腫瘍が疑われた多発性肺平滑筋過誤腫の 1 例. *呼吸* **5** (9): 1057-1062, 1986.
- 近藤 薫, 水野武郎, 丹羽 宏, 谷脇 聡, 関口一雄: 子宮筋腫手術10年後に発生した両側多発性肺平滑筋腫 (Benign metastasizing leiomyoma) の 1 例. *日胸外会誌* **36**: 2131-2135, 1988.
- 吉田信裕, 船橋啓臣, 加藤伸幸, 上田雅和, 浅野倫雄, 野崎英樹, 今井常夫, 佐藤康幸, 水野茂, 高木 弘: 両側多発陰影の鑑別診断が困難であった甲状腺乳頭癌の 1 例—いわゆる metastasizing leiomyoma の合併例—. *日臨外会誌* **50** (2): 290-293, 1989.
- Cramer SF, Meyer JS, Kraner JF, Camel M, Mazur MT, Tenenbaum MS: Metastasizing leiomyoma of the uterus. S-phase fraction, estrogen receptor, and ultrastructure. *Cancer* **45**: 932-937, 1980.
- Boyce CR, Facog, Buddhdev HN: Pregnancy complicated by metastasizing leiomyoma of the uterus. *Obstet Gynecol* **42**: 252-258, 1973.
- Horstmann JP, Pietra GG, Harman JA, Cole NG, Grinspan S: Spontaneous regression of pulmonary leiomyomas during pregnancy. *Cancer* **39**: 314-321, 1977.
- Stephenson CA, Henley FT, Goldstein AR: Benign metastasizing leiomyoma. *Alabama J Med Sciences* **21**: 78-81, 1984.
- Wolff M, Kaye G, Silva F: Pulmonary metastases (with admixed epithelial elements) from smooth muscle neoplasms. *Am J Surg pathol* **3**: 325-342, 1979.
- Orlowski TM, Stasiak K, Kolodziej J: Leiomyoma of the lung. *J Thorac Cardiovasc Surg* **76**: 257-261, 1978.

Multiple pulmonary leiomyoma, so-called benign metastasizing leiomyoma ; a case report

Hiroshi Matsui, Takeo Mizuno, Toshio Kasugai
Masaaki Sano, Tooru Kobayashi*

Department of Thoracic Surgery, Seirei Mikatahara Hospital, Hamamatsu, Japan

*Second Department of Surgery, Nagoya City University, Nagoya, Japan

A 53-year-female had had a hysterectomy for benign leiomyoma uteri at the age of 40. Multiple nodular opacities were seen in a recent routine chest X-ray. A total of 13 tumors were enucleated from both lungs. Histogical diagnosis was benign leiomyoma. This case was believed to be one of so-called "benign metastasizing leiomyoma."