症例報告

腹腔鏡下子宮筋腫核出後発生した子宮炎症性偽腫瘍の1例

島根県立中央病院産婦人科

吉野直樹、高橋也尚、西村淳一、江川恵子、上田敏子、松岡さおり、
栗岡裕子、森山政司、加藤一雄、山本和彦、岩成 治A Case of an Inflammatory Pseudotumor of the Uterus
Diagnosed After Laparoscopic SurgeryNaoki Yoshino, Narihisa Takahashi, Jun-ichi Nishimura, Keiko Egawa,
Toshiko Ueda, Saori Matsuoka, Hiroko Kurioka, Seiji Moriyama,
Kazuo Katou, Kazuhiko Yamamoto, Osamu Iwanari

Department of Obstetrics and Gynecology, Shimane Prefectural Central Hospital

Background: Inflammatory pseudotumor is a tumor-like mass of inflammatory origin. It is most commonly found in the lung or the orbit, but occurrences have been reported at nearly every site in the body. These tumors most commonly appear in young and middle-aged patients.

Case: A 37-year-old female presented with vaginal bleeding and anemia. Ultrasound and MRI showed a myoma like mass of 56 mm in maximum diameter at the posterior wall of the uterine body. Preoperative hormone therapy failed to shrink the mass. Histological examination of the mass following laparoscopic enucleation revealed spindle shaped mesenchymal cells with infiltration by inflammatory cells, consistent with inflammatory pseudotumor. Smooth muscle cells were seen scantily in the margins of the resected mass.

Conclusion: A rare inflammatory pseudotumor of the uterus is diagnosed after laparoscopic surgery.

Key Words: inflammatory pseudotumor, uterus, laparoscopic surgery

緒 言

炎症性偽腫瘍は通常単発性の限局性腫瘤を形成する非腫瘍性病変で、気管支、肺、そのほかの全身の諸臓器に見られる。肺以外に発生したIMT (Inflammatory Myofibroblastic Tumor) は小児ないし若年成人の腹腔内、後腹膜ないし骨盤腔に好発し、発熱、体重減少、貧血等の全身症状を呈する例が多い。しかし子宮に発生した例は現時点で13例の報告しかない。今回我々は、経膈超音波、MRIだけでは子宮筋腫との鑑別がつかず、手術後の病理検査の結果で炎症性偽腫瘍と診断された1例を経験したので報告する。

症 例

患者：37歳、女性

主訴：貧血、不正性器出血

妊娠・分娩歴：0妊0産

既往歴：なし

経過：2004年4月子宮筋腫の診断にて当科紹介受診となる。血液検査ではWBC $5400/\mu\text{l}$ 、RBC $419 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Hb 12.5g/dl、Ht 38.2%、Plt $19.8 \times 10^4/\text{mm}^3$ と貧血は認められず、超音波検査、MRI検査（図1、図2）にて子宮筋腫と診断し7月腹腔鏡下子宮筋腫核出術を施行した。子宮前壁体部に子宮筋腫核を認めるが、子宮体部後壁には腫瘍を認めなかった（図3、図4）。術後経過良好

図1 T1強調画像（造影）
（2004年）

図2 T2強調画像
（2004年）

図6 T1強調画像（造影）
（2007年）

図7 T2強調画像
（2007年）

図3 腹腔鏡下手術（子宮体
部前壁に筋腫核あり）
（2004年）

図4 腹腔鏡下手術（子宮体
部後壁に筋腫核なし）
（2004年）

であり、当院通院を終了とした。2006年春頃から不正性器出血と過多月経を認め、貧血を指摘され、2007年10月当科紹介受診となる。子宮がん検診は異常なかったが、血液検査ではWBC 3200/ μ l、RBC $290 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Hb 6.2g/dl、Ht 21.2%、Plt $38.3 \times 10^4/\text{mm}^3$ と貧血であった。超音波検査（図5）、MRI検査（図6、図7）にて子宮体部後壁に56×38mmの子宮腫瘍を認めた。子宮筋腫による鉄欠乏性貧血と診断し、GnRHa使用後腹腔鏡下子宮筋腫核出術を計画した。2007年10月からGnRHaを使用するも腫瘍は縮小せず、貧血の改善も認められず（術前にHbは8.5g/dlまでしか回復しなかった）、性器出血が続いた。臨床症状、MRIにて悪性腫瘍も否定できなかったため腹腔鏡下子宮筋腫核出術を断念し、2008年4月開腹後の子宮腫瘍摘出術を施行した。

図5 超音波所見（2007年）

手術所見1：（2004年7月）

全身麻酔下、腹腔鏡下手術を施行した。臍部分よりカメラを挿入し、両下腹部および臍左横部分よりトロッカーを挿入した。両側卵巣卵管に腫瘍はなく、腹腔内に癒着はなかった。バズプレッシン（100倍希釈）を使用後モノポーラー電気メスにて切開を入れ筋腫核を核出した。ポリグリカブロン縫合糸（モノクリル®）にて切開面を2層縫合し、出血のないことを確認後生理食塩水1000mlにて腹腔内を洗浄し、術層部分に再生酸化セルロース膜（インターシード®）を1枚貼付し閉腹した。

手術所見2：（2008年4月）

硬膜外麻酔下に開腹手術を施行した。両側卵巣卵管に腫瘍はなく、腹腔内に癒着はなかった。子宮底部から後壁に筋腫核と思われる腫瘍があり、前回手術部分にも子宮筋腫核を認めた。子宮底部から後壁に筋腫核と思われる腫瘍をモノポーラー電気メスを用いて核出し、ポリグリカブロン縫合糸（モノクリル®）にて切開面を2層縫合し、子宮前面の筋腫核も同様に摘出縫合した。出血のないことを確認後生理食塩水1000mlにて腹腔内を洗浄し、術層部分に再生酸化セルロース膜（インターシード®）を1枚貼付し閉腹した。摘出腫瘍はやわらかく、被膜は存在しないようにみえた。

病理組織所見

2004年の病理組織所見は「核分裂像は認められず、紡錘形の間葉系細胞増生もなく、リンパ球、形質細胞、好酸球も認められず子宮筋腫と診断」（図8、図9）であり、2008年の病理組織所見は「60×40×40mmの腫瘍で被膜は存在しなかった。細胞は紡錘形の間葉系細胞増生を示し、リンパ球、形質細胞、好酸球を認めた。一部に硝子化癥痕様の部分を認めるが、免疫染色で上皮性組織は認められず、子宮炎症性偽腫瘍と診断」（図10、図11）であった。

図8 肉眼所見（2004年）

図9 強拡大（H&E染色）（2004年）

図10 肉眼所見（2008年）

図11 強拡大（H&E染色）（2008年）

術後経過

2008年7月、12月には子宮筋腫核・子宮炎症性偽腫瘍を認めなかったが、2009年2月には6mm、9月には20mm、2010年3月には24mm、10月には29mmの腫瘤を認め、腫瘤の位置から判断し子宮炎症性偽腫瘍を疑っている。

考 察

炎症性偽腫瘍とされるものの多くの症例はおそらく感染ないし炎症の修復機転における慢性炎症細胞浸潤を伴う筋線維芽細胞および線維芽細胞の過剰な増殖であると考えられ、最近ではIMT (Inflammatory Myofibroblastic Tumor) の概念が提唱されている。肺に最も多く見られ、中年あるいは若年成人に見られることが多い。少数ではあるが、肝臓、皮膚、甲状腺、尿管、リンパ節、中枢神経系、唾液腺、膵臓、脾臓、女性生殖器などに認められる。炎症性偽腫瘍と鑑別診断を要す

る腫瘍は、良性腫瘍の場合には腹腔下手術が可能かどうかの判断でよいが、悪性腫瘍の場合には注意しなければならない。鑑別診断を要する悪性腫瘍では、表1のように悪性線維性組織球腫MFH (malignant fibrous histiocystoma) をはじめいくつか存在するので気をつけなければならないが、いずれも画像診断では判断が難しく、病理組織検査が必要となる。

臨床症状としては、非特異的腫瘤の存在による圧迫症状、不明熱、体重減少、貧血を認めることがある。臨床検査所見としては、貧血、血小板増多、血沈亢進、 γ グロブリン高値を認めることがある。今回の症例では、Hb 6.2g/dlと貧血を認める。それ以外の所見では、身長は161cmで体重が42kgであったが、これは2004年の腹腔下手術前の161cmで体重が43kgとほぼ同じなので体重減少とはいえない。その他不明熱、血小板増多は認められなかった。

表1 炎症性腫瘍と鑑別を要する悪性疾患および中間群の疾患

悪性疾患	悪性線維性組織球腫 MFH (malignant fibrous histiocystoma)
	炎症型悪性線維性組織球腫 inflammatory MFH
	平滑筋肉腫 leiomyosarcoma
	炎症型平滑筋肉腫 inflammatory leiomyosarcoma
中間群腫瘍	粘液炎症性線維芽細胞肉腫 myxoinflammatory fibroblastic sarcoma
	高分化型脂肪肉腫の亜型である炎症型脂肪肉腫 inflammatory liposarcoma

本症例において、3年半前に腹腔鏡下子宮筋腫核出術を施行したが、その時点で今回の腫瘍は存在しなかった（図11）。炎症性偽腫瘍が炎症の修復機転における慢性炎症細胞浸潤を伴う筋線維芽細胞および線維芽細胞の過剰な増殖であると考えられるが、今回の症例では腫瘍の位置、時間的経過を考えた場合、手術の影響で炎症性腫瘍が発生したとは考えにくい。その理由として、炎症性偽腫瘍とされるものの多くの症例は感染ないし炎症の修復機転における慢性炎症細胞浸潤を伴う筋線維芽細胞および線維芽細胞の過剰な増殖であると考えられるからである。

次に手術前に今回の症例を子宮筋腫以外の腫瘍と判断できるかという点について、3年半前のMRI（図1、図2）と今回のMRI（図6、図7）を比較した場合、通常の子宮筋腫よりはT2強調画像で高信号、造影剤投与で濃染していたが、子宮筋腫以外の腫瘍と判断するのは難しいと考えられる。実際、子宮に炎症性偽腫瘍が認められることは少なく、現在までに13例（表2）が報告されているのみであり、術前に炎症性偽腫瘍と診断されたものはなかった。ただ今回の症例が、術前のGnRHaに対する反応が悪く、縮小傾向が認められなかったこと、不正性器出血が続いていたこと、鉄剤を投与しても貧血の改善を認めなかったこと（術前にHbは8.5g/dlまでしか回復しなかった）などを考慮すると、通常の子宮筋腫とは違う腫瘍も考慮しなければならないと考えられた。術前の貧血（Hb 8.5g/dl）を考慮し、輸血後腹腔鏡下手術を行うべきか、輸血せずに腹腔鏡下手術を行なうべきか、あるいは開腹手術をすべきか迷ったが、最終的には患者家族と相談し開腹手術を選択した。今回の炎症性偽腫瘍の症例に対して貧血を理由に腹腔鏡下手術を躊躇したが、腹腔鏡下手術を選択すべきであると考えられた。その理由は、実際手

術を行い炎症性腫瘍部分は比較的柔らかい子宮筋腫核と同じような腫瘍であり、炎症性偽腫瘍部分と正常筋層との境界は明瞭であったからである。

2回目の術後、定期的に外来経過観察しているが、子宮炎症性偽腫瘍があった子宮後壁部分に再発が認められている。挙児希望があるため現在経過観察しているが、いずれ腹腔鏡下手術が必要になると考えられる。今後嚴重に管理し、手術適応と判断した場合には腹腔鏡下手術を行う予定である。

文 献

- 1) Anthony P.P : Inflammatory pseudotumour (plasma cell granuloma) of lung, liver and other organs. Histopathology 1993 ; 23 : 501-503.
- 2) Bahadori M et al : Plasma cell granulomas of the lung. Cancer 1973 ; 31 : 191-208. Hunt M A et al : Cutaneous inflammatory pseudotumor. Lesions resembling "inflammatory pseudotumors" or "plasma cell granuloma" of extracutaneous sites. Am J Surg Pathol 1990 ; 14 : 764-773.
- 3) Palazzo J P et al : Inflammatory pseudotumor of the pancreas. Histopathology 1993 ; 23 : 475-477.
- 4) Gilks CB et al : inflammatory pseudotumor of the uterus. Int J Gynecol Pathol 1987 ; 6 : 275-286.
- 5) 野吾和宏ほか：子宮頸部に発生した形質細胞肉芽腫. 内科宝函 1990 ; 37 : 45-47.
- 6) Pascual Abenoza et al : Inflammatory pseudotumor of the cervix. Int J Gynecol Pathol 1994 ; 13 : 80-86.
- 7) Kargi HA et al : Inflammatory pseudotumor of the uterus:a case report. Tumori 1994 ; 1 : 454-456.
- 8) Coffin CM et al : Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). Am J Surg Pathol 1995 ; 19 : 859-872.
- 9) 薄田浩幸ほか：子宮に発生した炎症性偽腫瘍の1例. 診断病理 2002 ; 19 : 51-53.
- 10) Rabban JT et al : Inflammatory myofibroblastic tumor of the uterus. Am J Surg Pathol 2005 ; 29 : 1348-1355.
- 11) Shintaku M et al : Inflammatory myofibroblastic tumor of the uterus with prominent myxoid change. Pathol int 2006 ; 56 : 625-628.

表2 子宮の炎症性偽腫瘍報告例

症例	年齢(歳)	発生部位	既往症等
1 ⁴⁾	6	子宮体部	
2 ¹⁰⁾	6	不詳	
3 ¹⁰⁾	14	子宮体部	
4 ¹⁰⁾	25	子宮頸部	経口避妊薬
5 ⁴⁾	30	子宮体部	
6 ⁹⁾	36	子宮体部	子宮筋腫
7 ¹⁰⁾	38	子宮頸部	プロゲステロン、IUD
8 ¹⁰⁾	45	子宮体部	プロゲステロン、IUD
9 ¹⁰⁾	46	子宮頸部	プロゲステロン、IUD
10 ⁵⁾	51	子宮頸部	
11 ⁷⁾	53	子宮体部	
12 ⁶⁾	58	子宮頸部	
13 ¹¹⁾	63	子宮体部	子宮筋腫