

## 子宮留膿症を契機に診断した子宮腺線維腫の一例

松島 彩子・野田 望・張本 姿・上田 明子・坂下 知久

JA 尾道総合病院 産婦人科

### Adenofibroma of the uterus presenting as pyometra: A case report

Ayako Matsushima・Nozomi Noda・Shina Harimoto・Akiko Ueda・Tomohisa Sakashita

Department of Obstetrics and Gynecology, JA Onomichi General Hospital

子宮腺線維腫は非常に稀な良性の子宮体部上皮性・間葉性混合腫瘍である。今回、子宮留膿症を契機として診断に至った子宮腺線維腫の一例を経験したので報告する。症例は74歳、未妊、50歳閉経。10日前からの発熱、腹痛、腰痛、不正出血を主訴に前医を受診し、圧痛を伴う巨大腹部腫瘍を認めため当院を紹介受診した。触診で臍上2横指に達する腹部腫瘍を認めた。内診では腔内に手拳大の不整形腫瘍を触知し、強い悪臭を伴う暗赤色の膿性帯下を認めた。腹部超音波検査では単房性の嚢胞を認め、内部の液面形成と充実成分を伴っていた。CTでは子宮頸部から体下部にかけての腫瘍と子宮内腔の液体貯留を認め、子宮体下部に発育した腫瘍の増大に伴う巨大な子宮留膿症と診断した。抗菌薬を投与したが解熱せず、血液検査データの増悪もあり第5病日に全身麻酔下で経腔的ドレナージを試みた。子宮内から腫瘍塊と多量の膿汁が排出した。ドレナージ後は速やかに解熱し、血液検査データも改善したため第9病日に退院した。排出した腫瘍の病理組織診断は子宮腺線維腫(adenofibroma)であった。ドレナージから50日後に子宮内腫瘍が再増大し留膿症も再発していた。悪性腫瘍も否定できないため、ドレナージから73日後に単純子宮全摘術、両側付属器摘出術を行った。子宮内腔には体下部右前壁から発育する4 cmの房状、一部乳頭状の腫瘍を認めた。病理組織診断は子宮腺線維腫として矛盾しなかった。しかし子宮腺線維腫は腫瘍切除後の再発や悪性腫瘍の合併例が報告されており、転帰が不明であるため悪性疾患に準じて5年間は経過観察する方針としている。

Uterine adenofibroma is a rare mixed tumor composed of benign epithelial and mesenchymal components. We report the case of a 74-year-old postmenopausal woman with a uterine adenofibroma presenting as pyometra. She presented with a fever for 10 days, abnormal vaginal bleeding, and lower abdominal and back pain. We found an abdominal mass and a vaginal tumor with a dark red discharge and strong odor. Transabdominal ultrasonography revealed fluid in the abdominal mass. Contrast-enhanced computed tomography showed an intrauterine mass arising from the corpus uteri. We concluded that the pyometra was caused by an enlarged intrauterine tumor. Antimicrobial agents were administered, but the fever remained and blood test results worsened. Transvaginal drainage was performed under general anesthesia on the fifth hospital day. The tumor and a large pus amount were drained; subsequently, the fever resolved and blood test results improved. She was discharged on the ninth day. Histopathological examination revealed an adenofibroma. Fifty days after drainage, the intrauterine tumor and pyometra recurred. Seventy-three days after drainage, a total abdominal hysterectomy and bilateral salpingo-oophorectomy were performed to exclude malignancy. The tumor was a broad-based polypoid mass comprising papillary projections. Histopathological diagnosis was a non-malignant adenofibroma. Despite being benign, adenofibromas may recur if locally excised and complicate the diagnosis. Since the outcome is unknown, the patient will be followed-up for several years.

キーワード：子宮腺線維腫, 子宮良性腫瘍, 子宮留膿症

Key words : adenofibroma of the uterus, benign uterine lesions, pyometra

## 緒 言

子宮腺線維腫(adenofibroma)はOber<sup>1)</sup>によって1959年に報告された良性の子宮体部上皮性・間葉性混合腫瘍であり、臨床的・病理組織学的に腺肉腫や癌肉腫との鑑別および上皮性悪性腫瘍との合併の有無が重要とされている<sup>2)</sup>。非常に稀な腫瘍でありその転帰については

必ずしも明らかでない。これまでの報告例の大半が不正性器出血を契機として発見されているが、巨大な子宮留膿症を契機として診断に至った一例を経験したので報告する。

## 症 例

患者:74歳 身長150 cm, 体重60 kg 未妊 性交歴なし

婦人科受診歴なし

主訴：腹痛，腰痛，不正性器出血

月経歴：初経14歳，閉経50歳

既往歴：左眼視力障害（詳細不明），右眼白内障術後

現病歴：10日前からの腹痛，腰痛，不正性器出血を主訴に近医内科を受診した。婦人科疾患が疑われ同日当院に紹介受診した。

来院時現症：意識清明。血圧110/56 mmHg，脈拍84bpm，体温 37.0 °C，呼吸数12 回/分。臍上2横指に達する腹部腫瘤を触知し自発痛・圧痛あり。反跳痛なし。腰痛の訴えがあったが肋骨脊柱角の叩打痛はなし。血液検査：WBC 11600 / $\mu$ L（好中球分画84%），CRP 24.98 mg/dLと上昇しており細菌感染が疑われた。腫瘍マーカーはCA125 56.9 U/mL（基準値<35.0 U/mL）と軽度の上昇を認めたが，CEA 1.6 U/mL（基準値<5.0 U/mL），CA19-9 3.8 U/mL（基準値<37.0 U/mL）は基準値内であった。

内診：腔内は柔らかい手拳大の不整形腫瘤で充満していた。

腔鏡診：強い悪臭を伴う暗赤色漿液性の帯下がみられた。腔展開に伴う疼痛が強く腫瘤の詳細な観察は困難であった。腔内腫瘤の生検では壊死組織のみであり診断に至らなかった。

経腹超音波：臍上2横指に達する嚢胞で液面形成を認め，一部に充実成分を伴っていた（図1）。

骨盤部造影CT：子宮体下部から頸管内にかけて腫瘤を認め，子宮体部筋層は高度に菲薄化していた（図2）。子宮体下部に発育した腫瘍の増大に伴う子宮留膿症と診断し入院とした。

経過：第2病日に39°Cの発熱がありアンピシリン・スルバクタムの投与を開始したが解熱せず，第5病日にはWBC 18000 / $\mu$ L，CRP 23.70 mg/dLと上昇していた。敗血症に至る可能性がある判断し，全身状態の改善目的に同日全身麻酔下での経腔的ドレナージを試みた。腫瘍は頸管から腔内にあり，牽引すると容易に断裂し，多量の膿汁と共に排出した（図3）。膿汁からは*Streptococcus species*，*Bacteroides ovatus*，*Peptostreptococcus asaccharolyticus*などの嫌気性菌が検

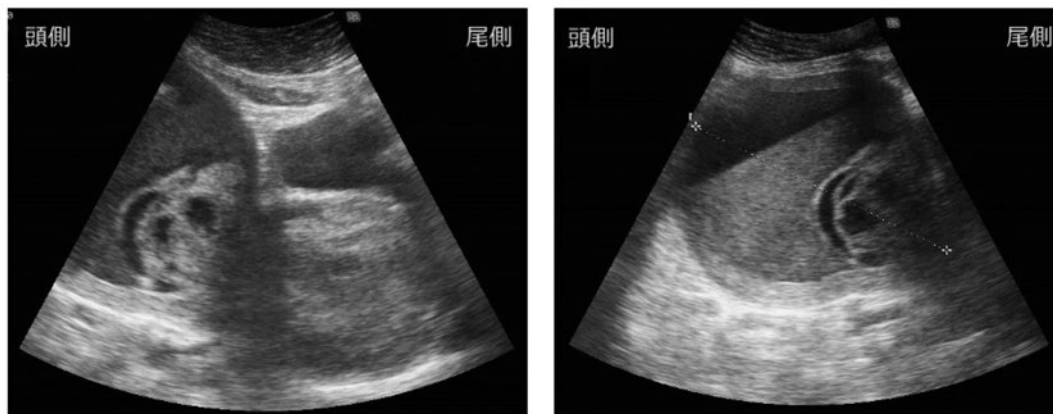


図1 初診時の経腹超音波画像  
嚢胞内部に液面形成を認め，一部に充実成分を伴っていた。

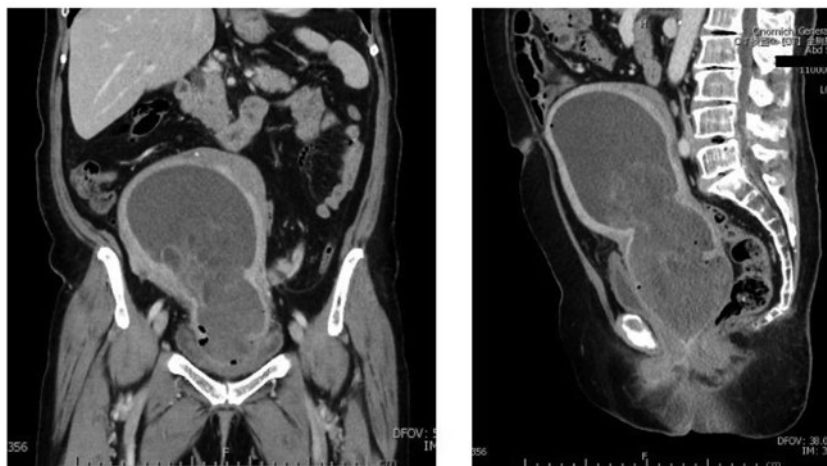


図2 初診時の造影CT画像  
子宮体下部から頸管内にかけて腫瘤を認め，子宮腫瘤による子宮留膿症と診断した。

出された。術後は速やかに解熱し、経膈超音波検査で腫瘍の残存は確認出来ず、血液検査データも改善したため第9病日に退院した。腫瘍の病理組織検査では線維成分の中に大小不同の腺管構造が混在していた(図4)。核分裂像は400倍視野で10HPF中0~1であり、悪性の腺肉腫よりも細胞密度は低く異型もなかったため、良性の子宮腺線維腫(adenofibroma)と診断した。病理結果を受けて子宮摘出を考慮したが膿性帯下が持続していたため、子宮摘出術後の骨盤内膿瘍の発生を危惧し感染改善を期待して待機する方針とした。その後受診が途絶え、ドレナージから50日後に再診した時には子宮内の腫瘍が約4 cmに再増大しており留膿症も増悪していた(図5)。急速に増大することから悪性腫瘍の可能性を

考慮し、ドレナージから73日後に単純子宮全摘術、両側付属器摘出術を行った。摘出子宮の内腔には体下部前壁から発育する約4 cmの房状、一部乳頭状の腫瘤を認めた(図6)。病理結果は子宮腺線維腫として矛盾せず、悪性所見はなかった。術後は骨盤内膿瘍の発生なく順調に経過し、術後6日目に退院した。以後定期的にCA125、超音波検査、CT、膈断端細胞診で経過観察しているが、術後9ヶ月現在、再発なく経過している。

## 考 案

子宮体部上皮性・間葉性混合腫瘍は子宮腫瘍の中でも比較的稀とされている。上皮成分・間質成分の両者とも良性であれば腺線維腫(adenofibroma)、間質成分の



図3 摘出した腫瘍

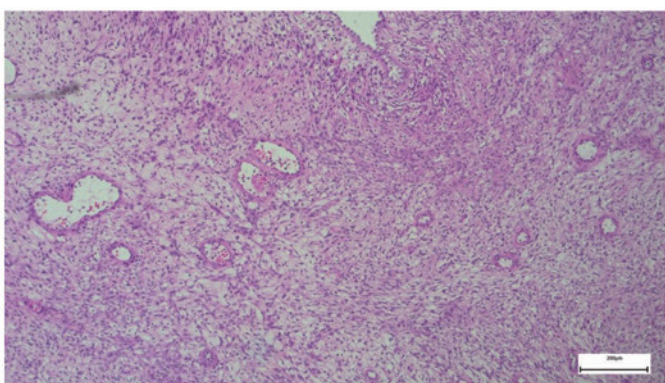


図4 病理所見  
線維成分の中に大小不同の腺管構造が混在していた。(HE染色)



図5 ドレナージから50日後の経膈超音波画像  
子宮内腫瘍が再増大していた。

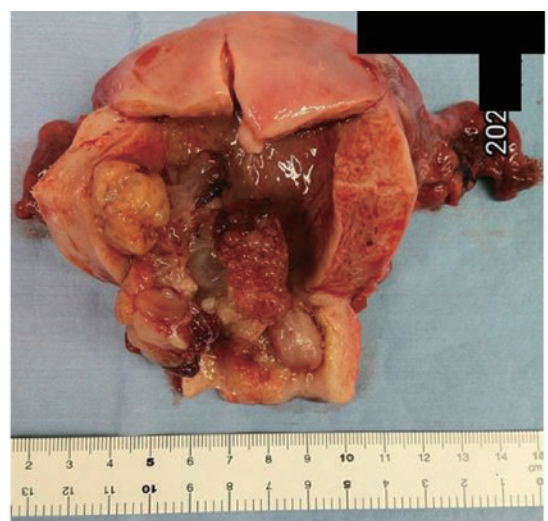


図6 摘出子宮  
体下部前壁から発育する約4 cm大の房状、一部乳頭状の腫瘤がみられた。

表1 本邦における子宮腺線維腫の報告例

	報告年	年齢	主訴	治療	転帰	特記事項
藤井ら <sup>5)</sup>	1977	63歳	頻尿、下腹部痛	TAH+BSO	約1年間再発なし	
岩井ら <sup>6)</sup>	1984	51歳	性器出血、水溶性帯下	TAH+BSO	不明	
廣本ら <sup>7)</sup>	1995	81歳	腫瘍穿孔による急性腹症	TAH+BSO	不明	
Horieら <sup>8)</sup>	1996	67歳	下腹部痛	TAH+BSO	約2年間再発なし	
飛岡ら <sup>9)</sup>	1996	45歳	過多月経、下腹部痛	TAH	不明	
植田ら <sup>10)</sup>	1998	58歳	不正性器出血	TAH+BSO	約6ヶ月間再発なし	
稲坂ら <sup>11)</sup>	1999	66歳	不正性器出血	TAH+BSO	約1年間再発なし	
園田ら <sup>12)</sup>	2000	70歳	下腹部痛	TAH+BSO	不明	
佐藤ら <sup>13)</sup>	2001	28歳	なし（妊娠時に偶発的に診断）	腫瘍摘出術	約1年間再発なし	
Ohshimaら <sup>14)</sup>	2002	69歳	不正性器出血	TAH	不明	タモキシフェン内服中
Ishikoら <sup>15)</sup>	2002	32歳	不正性器出血	腫瘍摘出術	不明	ターナー症候群合併
Hayasakaら <sup>16)</sup>	2006	74歳	なし（フォローアップ中偶発的に診断）	RH	不明	タモキシフェン内服中
Konishiら <sup>17)</sup>	2006	42歳	不正性器出血	TAH+BSO	約6ヶ月間再発なし	
糸賀ら <sup>18)</sup>	2007	42歳	不正性器出血	TCR→TAH+BSO	約1年間再発なし	
橋本ら <sup>19)</sup>	2009	70歳	不正性器出血	TAH+BSO	約4ヶ月間再発なし	
Mikamiら <sup>20)</sup>	2010	73歳	タール便	TAH+BSO+PLA	不明	子宮体部明細胞癌、直腸癌を合併
田中ら <sup>21)</sup>	2016	73歳	不正性器出血	TCR	約1年間再発なし	
Watanabeら <sup>22)</sup>	2018	75歳	無症状	TAH+BSO	約2年間再発なし	
自験例	2023	74歳	発熱、腹痛、腰痛、不正性器出血	TAH+BSO	約9ヶ月間再発なし	

TAH : total abdominal hysterectomy BSO : bilateral salpingo-oophorectomy RH : radical hysterectomy  
PLA : pelvic lymphadenectomy TCR : trans cervical resection

み悪性であれば腺肉腫 (adenosarcoma), 両者とも悪性であれば癌肉腫 (carcinosarcoma) と診断される。子宮腺線維腫 (adenofibroma) はOberによって1959年に初めて報告された<sup>1)</sup>。約90%は子宮体部, 約10%は頸部に発生する<sup>3)</sup>。超音波では不均一な多嚢胞性腫瘍として描出され, MRIでは病変内部の豊富な線維性間質を反映して, T2強調像で低信号を示すポリープ状腫瘍として描出される<sup>4)</sup>。臨床的・病理組織学的に腺肉腫との鑑別が重要とされており, Zaloudek et al.<sup>2)</sup> は病理組織学的な子宮腺線維腫の鑑別点を①核分裂像が10HPF中3以下, ②間葉細胞に異型がない, ③組織的な悪性成分を有さず筋層浸潤がないこと, としている。本症例は①核分裂像が10HPF中0から1 ②異型のない紡錘形細胞を認め ③上皮は低円柱状の腺管構造であり, 腫瘍の筋層浸潤を認めず確定診断に至った。本邦では自験例を含めると18例の報告があり (表1)<sup>5)-22)</sup>, 大半が閉経後に発症し, 不正性器出血を契機として発見されている。

一方, 子宮留膿症の発生頻度は全婦人科患者の0.01~0.5%とされ, 60歳以上の高齢者に限れば13.6%に上るとされている<sup>23)</sup>。原因には加齢に伴う頸管萎縮による狭窄, 子宮頸癌や体癌, 子宮筋腫, 放射線治療による子宮頸管炎などが挙げられる。典型的な症状は膿性帯下・閉経後出血・下腹部痛の3徴とされているが, 穿孔による急性腹症で診断に至る症例もあり, その場合は死亡率15~20%とされている<sup>23)</sup>。子宮留膿症を契機に診断された子宮腺線維腫は本邦では初めての報告である。

子宮腺線維腫の発生要因は不明であるが, タモキシフェンとの関連を示唆する報告がある<sup>16) 24)</sup>。タモキシ

フェンは子宮内膜増殖症や子宮内膜ポリープ, 子宮内膜癌のリスクを増加させることが知られている。子宮腺線維腫との関連も示唆されており, 本邦の18例の報告の中でも2例<sup>14) 16)</sup> がタモキシフェンを内服していた。

治療法については, 腫瘍切除のみを行った症例では再発が報告されている。Zaloudek et al.<sup>2)</sup> は腫瘍切除から4年経って再発した症例を, Seltzer et al.<sup>25)</sup> とI et al.<sup>26)</sup> はそれぞれ2年経って再発した症例を報告している。一方, 子宮全摘術を行った症例での再発・転移の報告はなかった。

悪性腫瘍との関連では, 腺肉腫との鑑別が重要であるだけでなく, 上皮性悪性腫瘍との合併例の報告もある。Mikami et al.<sup>20)</sup> は子宮体部明細胞癌との合併, Venkatraman et al.<sup>27)</sup> は漿液性癌との合併, Miller et al.<sup>28)</sup> は腺癌との合併を報告している。またOh et al.<sup>29)</sup> は, 良性の腺線維腫様領域の一部の腺に悪性転化を示す細胞学的異型が認められ, 腺線維腫から発生したと推測される癌肉腫の1例を報告している。これらの報告から上皮成分と間葉成分のそれぞれに悪性転化の可能性があることが示唆される。以上から子宮腺線維腫は腫瘍切除後の再発例や悪性腫瘍の合併例があり, 悪性転化する可能性もある。そのため妊孕性温存希望がない場合は子宮摘出が推奨されている。

本症例では排出した腫瘍塊の病理結果を受けて子宮摘出を考慮したが, ドレナージ直後には残存腫瘍を認めなかったこと, 膿性帯下が持続していたこと, また受診が途絶えたことなどの要因から子宮摘出の時期が遅れたことは反省すべき点であったと思われる。

子宮腺線維腫は稀な疾患であるため転帰が不明であり、本症例は子宮摘出後であるが、腫瘍摘出から再発が急速であったことから、悪性疾患に準じて5年間は経過観察を行う方針としている。

## 結 語

子宮留膿症を契機として診断に至った子宮腺線維腫の一例を経験した。稀な疾患であるため転帰に不明な点があり、悪性腫瘍の合併例も報告されているため、子宮摘出後であるが慎重な経過観察を行っている。

## 文 献

- 1) Ober WB. Uterine sarcomas: histogenesis and taxonomy. *Ann NY Acad Sci* 1959; 75: 568-585.
- 2) Zaloudek CJ, Norris HJ. Adenofibroma and adenosarcoma of the uterus. A clinicopathologic study of 35 cases. *Cancer* 1981; 48: 354-366.
- 3) Silverberg SG, Kurman RJ. Tumor of uterine corpus and gestational trophoblastic disease. In *Atlas of Tumor Pathology*. 3rd Series. Fascicle 3. Washington DC, Armed Forces Institute of Pathology, 1992.
- 4) 小山貴. 子宮体部疾患のMR画像診断. *病理と臨床* 2018; 26(4): 340-351.
- 5) 藤井信吾, 伴千秋, 山際裕史. 巨大子宮内膜ポリープ分娩の1例. *産と婦* 1977; 44: 819-822.
- 6) 岩井正純, 小西郁生, 藤井信吾, 川口周利, 岡村均, 鈴木瞭. 子宮に発生したMüllerian adenofibromaの組織学的検討. *日産婦誌* 1984; 36: 44-48.
- 7) 廣本雅之, 井野口千秋, 越智誠, 真田修, 岸直彦, 井藤久雄. 穿孔性腹膜炎を呈した子宮papillary adenofibromaの1例. *日臨外医会誌* 1995; 56: 159-162.
- 8) Horie Y, Ikawa S, Kadowaki K, Minagawa Y, Kigawa J, Terakawa N. Lipoadenofibroma of the uterine corpus. Report of a new variant of adenofibroma (benign müllerian mixed tumor). *Arch Pathol Lab Med* 1995; 119(3): 274-276.
- 9) 飛岡弘敏, 佐藤正幸, 前島澄子, 吉田佳子, 菊川美一, 山内智文, 佐野文男, 森道夫. 子宮体部腺線維腫の1例. *日本臨床細胞学会雑誌* 1996; 35: 609-612.
- 10) 植田嘉代子, 市村友季, 河村直樹, 角俊幸, 安井智代, 平井光三, 出口昌昭, 石河修, 荻田幸雄, 若狭研一, 植田隆. 子宮腺線維腫の1例. *産婦の進歩* 1998; 50: 10-13.
- 11) 稲坂織恵, 小野一郎, 原田竜也, 田口誠, 大塚伊左夫, 久保田俊郎, 麻生武志. 子宮体部腺線維腫の1例. *日産婦東京会誌* 1999; 48(4): 549-552.
- 12) 園田直子, 岩政仁, 鏡輝雄, 福田精二, 島田清. 子宮体部に発生した腺線維腫の1例. *日産婦熊本会誌* 2000; 44: 35-38.
- 13) 佐藤賢一郎, 水内英充, 塚本健一, 佐藤太一, 藤田美樹. 妊娠に合併した子宮腺線維腫の1例. *産と婦* 2001; 4(109): 528-535.
- 14) Oshima H, Miyagawa H, Sato Y, Satake M, Shiraki N, Nishikawa H, Arakawa A, Ogino H, Hara M. Adenofibroma of the endometrium after tamoxifen therapy for breast cancer: MR findings. *Abdom Imaging* 2002; 27(5): 592-594.
- 15) Ishiko O, Sumi T, Ueda K, Kawamura N, Ogita S. Uterine cervical adenofibroma associated with Turner's syndrome in a young woman. *Arch Gynecol Obstet* 2002; 267(1): 49-50.
- 16) Hayasaka K, Morita K, Saitoh T, Tanaka Y. Uterine adenofibroma and endometrial stromal sarcoma associates with tamoxifen therapy: MR findings. *Comput Med Imaging therapy* 2006; 30(5): 315-318.
- 17) Konishi Y, Sato H, Fujimoto T, Tanaka H, Takahashi O, Tanaka T. Adenofibroma of the endometrium protruding into the vaginal cavity: Findings on transvaginal ultrasonography, MRI and CT. *J Obstet Gynaecol Res* 2006; 32(6): 623-627.
- 18) 糸賀知子, 福井雅子, 太田篤之, 依田綾子, 西岡暢子, 小堀宏之, 長沢敢, 山本勉, 岡田基. 短期間で再発を繰り返したendometrioid adenofibromaの1例. *日産婦埼玉会誌* 2007; 37: 27-32.
- 19) 橋本彩, 高濱潤子, 丸上永晃, 武輪恵, 伊藤高広, 北野悟, 吉川公彦. 子宮体部腺線維腫の1例. *臨床放射線* 2009; 54(6): 796-799.
- 20) Mikami S, Kikunaga H, Kameyama K, Mukai M. Clear cell adenocarcinoma arising in endometrial adenofibroma. *Pathol Int* 2011; 61(3): 167-170.
- 21) 田中佑治, 永坂万友子, 平田貴美子, 高橋真理子, 小林昌. 子宮鏡検査にて診断し得た子宮腺線維腫の1例. *公立甲賀病院紀要* 2016; 19: 35-40.
- 22) Watanabe H, Harada N, Nobuhara I, Haruta N, Higashiura Y, Watanabe S. Magnetic resonance imaging and flexible hysteroscopic findings of a uterine adenofibroma: Case report and literature review. *Case Rep Obstet Gynecol* 2018; 9685683.
- 23) 木村直美, 加藤悠太, 橋本陽, 山内桂花, 近藤恵美, 柴田茉莉, 小崎章子, 水野輝子, 松川泰, 熊谷

恭子, 池内政弘, 樋口和宏. 主治療直前に子宮留膿腫が穿孔し, 放射線療法, 化学療法後に子宮腸管瘻・腸管皮膚瘻を発症した子宮頸癌の1例. 日農医誌 2022; 71(4): 348-356.

- 24) Shi H, Chen X, Lv B, Zhang X. Concurrent tamoxifen-related Müllerian adenofibromas in uterus and ovary. *Int J Clin Exp Pathol* 2015; 8(11): 15381-15385.
- 25) Seltzer VL, Lwvine A, Spiegel G, Rosenfeld D, Coffey EL. Case report adenofibroma of the uterus: multiple recurrences following wide local excision. *Gynecological Oncology* 1990; 37(3): 427-431.
- 26) I LC, Chi LC, Chun SH. Adenofibroma of the uterine cervix coexistent with endometriosis. *Taiwan J Obster Gynecol* 2012; 51(2): 285-288.
- 27) Venkatraman L, Elliott H, Steele EK, McClelland HR, McCluggage WG. Serous carcinoma arising in an adenofibroma of the endometrium. *Int J Gynecol Pathol* 2003; 22(2): 194-197.
- 28) Miller KN, McClure SP. Papillary adenofibroma of the uterus. Report of a case involved by adenocarcinoma and review of the literature. *American Journal of Clinical Pathology* 1992; 97(6): 806-809.
- 29) Oh J, Park SB, Han BH, Lee ES, Park HJ. Imaging features of carcinosarcoma arising from adenofibroma of the uterus: A case report. *Curr Med Imaging* 2020; 16(8): 1048-1051.

---

**【連絡先】**

松島 彩子

JA 尾道総合病院産婦人科

〒722-8508 広島県尾道市平原一丁目10-23

電話: 0848-22-8111 FAX: 0848-23-3214

E-mail: amfearlessly@gmail.com