

腹腔鏡下子宮全摘術を行ったcotyledonoid dissecting leiomyomaの1例

藤村 大志^{1) 2)}・竹谷 俊明²⁾・岡田 理¹⁾・杉野 法広^{1) 2)}

1) 山口県済生会豊浦病院 産科婦人科

2) 山口大学大学院医学系研究科 産科婦人科学講座

Cotyledonoid dissecting leiomyoma treated by laparoscopic total hysterectomy: A case report

Taishi Fujimura^{1) 2)}・Toshiaki Taketani²⁾・Osamu Okada¹⁾・Norihiko Sugino^{1) 2)}

1) Department of Obstetrics and Gynecology, Saiseikai Toyoura General Hospital

2) Department of Obstetrics and Gynecology, Yamaguchi University Graduate school of Medicine

【緒言】 Cotyledonoid Dissecting Leiomyoma: CDLは、肉眼的に胎盤葉に類似した形態を示し子宮筋層内を切り裂くように進展する稀な良性子宮平滑筋腫瘍である。CDLはその特徴的な発育形式から悪性腫瘍との鑑別に苦慮することが多い。今回我々は、術前にCDLを鑑別疾患にあげ腹腔鏡下子宮全摘術を施行した症例を経験したので報告する。

【症例】 37歳、2妊2産、既往歴に特記すべき事項なし。過多月経、月経困難症を主訴に当科初診された。骨盤造影MRI検査では子宮体部後壁筋層内からDouglas窩に突出する8.0×7.5cm大の腫瘍を認めた。腫瘍は分葉状でT2強調像で低信号を示す小結節が多発し、その周囲をT1強調像で等信号、T2強調像で高信号と低信号を含む不均一な信号を呈す部位が覆うように存在しており、同部位は造影不良領域を伴った。腫瘍と筋層との境界はやや不明瞭であったが、一部茎状に連続している構造を認めた。明らかな拡散制限はなく、血中LDHの上昇は認めなかった。以上より変性子宮筋腫を伴う多発子宮筋腫と診断、発育形式からCDLを鑑別疾患にあげ腹腔鏡下子宮全摘術を施行した。腹腔内を観察したところ、子宮後壁漿膜下に多発する小腫瘍と腫瘍間に増生する小血管を認め、胎盤葉に類似する所見であった。一部の筋腫は漿膜下から骨盤漏斗韧带へ向けて発育していた。摘出標本において、腫瘍は筋層内から発生し筋層を切り裂くように漿膜へ向けて発育していたが、出血や壊死所見は認めなかった。組織学的、肉眼的増殖形態からCDLと診断した。

【結語】 術前に子宮外向性発育を呈する分葉状腫瘍を認める際には、CDLを念頭に置き治療方針を決定する必要がある。

Cotyledonoid dissecting leiomyoma (CDL) is a rare benign uterine smooth muscle tumor with a placental leaf-like structure that develops during dissection of the muscle layer. A 37-year-old woman with gravidity 2 and parity 2 presented with a chief complaint of hypermenorrhea and dysmenorrhea. Pelvic magnetic resonance imaging showed a large pelvic mass measuring 8.0×7.5cm containing multiple low-signal nodules on T2-weighted images surrounded by high or low-signal nodules on T2-weighted images. The border between the tumor and muscle layer was unclear, but some stalk-like structures were observed. The masses were located in the left posterolateral myometrial wall, with extrauterine extension. A laparoscopic total hysterectomy was performed on the suspicion of degenerated leiomyoma or CDL. Histological examination revealed a neoplasm consisting of spindle cell nodules, leading to the final diagnosis of CDL, primarily based on the tumor's growth appearance.

キーワード：子宮筋腫, cotyledonoid dissecting leiomyoma, 腹腔鏡下子宮全摘術

Key words: leiomyoma, cotyledonoid dissecting leiomyoma, laparoscopic total hysterectomy

緒言

Cotyledonoid Dissecting Leiomyoma: CDLは1996年に Roth et al.が提唱した子宮平滑筋腫の亜型であり、肉眼的に胎盤葉に類似した形態を示し、子宮筋層内を切り裂くように進展することを特徴とする¹⁾。その発育形態から術前に悪性腫瘍との鑑別が困難な良性平滑筋腫瘍の一つである²⁾。今回我々は、術前にCDLを鑑別疾患にあげ、変性子宮筋腫を伴う多発子宮筋腫の診断のもと腹腔鏡下子宮全摘術を施行した一例を経験したので報告す

る。

症例

患者は37歳、2妊2産。既往歴・家族歴に特記すべき事項はない。過多月経、月経困難症を主訴に当院を受診した。経膈超音波検査ではDouglas窩に子宮との境界が不明瞭な7cm大の腫瘍を認めた(図1)。腹水の貯留は認めなかった。卵巣腫瘍や子宮腫瘍との鑑別のため測定した腫瘍マーカーではCA125 16.4U/mL, CEA 0.7ng/mL, SCC 1.0ng/mL, LDH 139IU/mLであり上昇

を認めなかった。子宮頸部細胞診はNILM，子宮内膜細胞診はclass IIであった。造影CT検査ではリンパ節の腫大や遠隔病変を認めなかった。骨盤部MRI検査では，子宮後壁との境界が不明瞭な8.0×7.5cm大の腫瘤を認めた。腫瘤は子宮後壁筋層内に多発する1cm大の小腫瘤と子宮外に発育する1cm大の小腫瘤の集合体から構成されていた。小腫瘤はT1強調像で筋層と同程度の信号強度，T2強調像で筋層と同程度からやや高い信号強度を呈していた。造影MRI T1強調像矢状断では子宮後壁筋層内から外向性に発育する腫瘤の茎状構造物を認め，発育する小腫瘤の一部は造影不良域を伴った（図2）。拡散強調画像，ADC mapでは拡散制限を認めなかった。T2強調像水平断では，子宮外に進展する小腫瘤が後腹膜腔へ進展する像を呈していた（図3）。以上より，術前診断は水腫様変性を来した多発子宮筋腫とし，小腫

瘍が子宮外向性に発育している点，筋層内を切り裂く様に増殖している点からCDLを鑑別疾患とした。患者には変性した子宮筋腫を含む多発子宮筋腫であるが，発育形態が非典型的であり，子宮を切り裂くように増殖する珍しい筋腫である可能性があること，临床上は悪性所見を認めないことを十分にインフォームドコンセントを行い，腹腔鏡下子宮全摘術を施行した。術中所見：腹水は少量，子宮後壁左側から発育する超手拳大の腫瘤は，5mmから15mm大の弾性軟な小腫瘤が分葉上に発育しており，表面に小血管の増生を認めた。外観は胎盤に類似していた（図4）。腫瘤は子宮漿膜下と筋層内で増殖しており，左広間膜内から骨盤漏斗靭帯を這うようにして後腹膜腔を頭側へ向け増殖していた（図5）。両側付属器は正常外観であった。広間膜に増殖する分葉上の腫瘤を全て核出し，その後は通常通りの手順で腹腔鏡下子宮

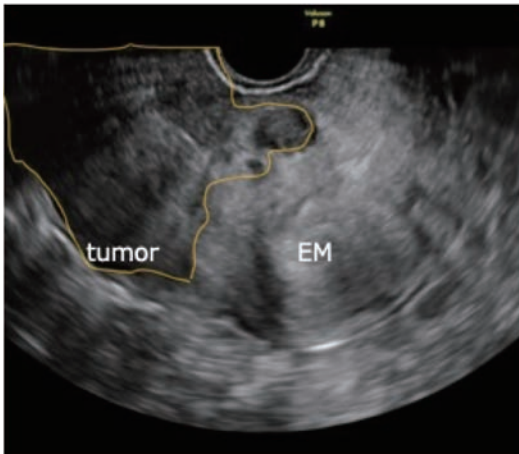


図1 初診時経腔超音波像

子宮筋層との境界が不明瞭なlow echoic lesionを認める。

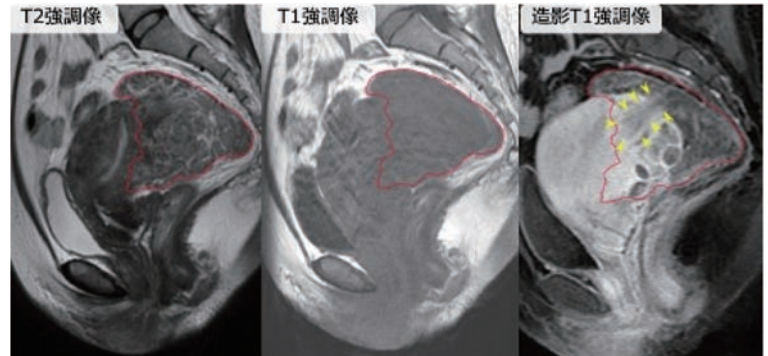


図2 MRI画像 矢状断

筋層との境界が不明瞭な腫瘤はT1強調像で子宮筋層と同程度の信号強度，T2強調像で一部高信号域を伴い，造影T1強調像では子宮筋層から外向性に茎状の構造部を認める（黄色矢印）。

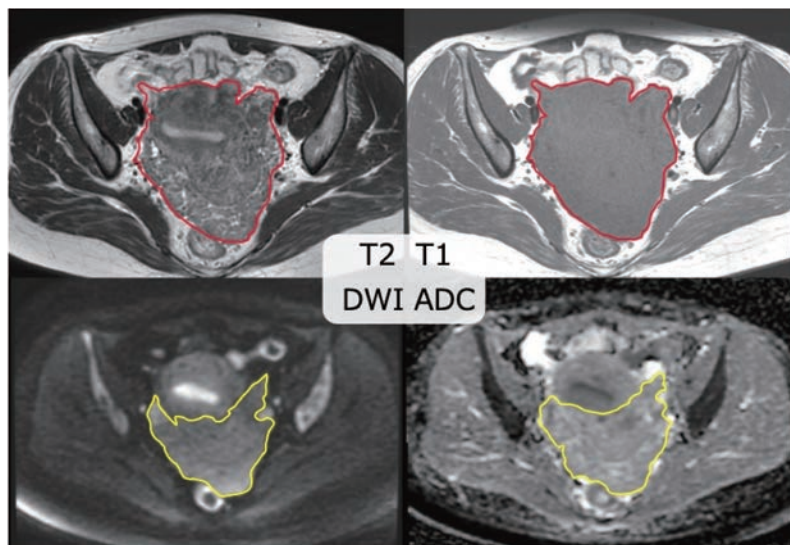


図3 MRI画像水平断

T2強調像では，子宮漿膜下に小腫瘤の増生を認め，後腹膜腔へ進展している。DWI（拡散強調画像）やADC map（拡散係数画像）では拡散制限を認めない。

全摘術を施行した。腫瘍は超手拳大であったが、弾性軟な小腫瘍の集積であったため細切せずに経腔的に回収した。手術時間は2時間47分、子宮重量は354gであった。摘出標本では子宮後壁左側の筋層内を切り裂くように外向性発育を呈する小腫瘍の集合体を認めた。MRIで茎状構造物を呈していた部位は、筋腫とそれに囲まれた小血管の集積であった(図6)。病理組織標本では、子宮筋腫に典型的な紡錘形細胞が錯綜配列を示す小結節が子宮筋層を切り裂くように増生しており、間質は著明な血管増生と浮腫状変化を認めた(図7)。一方で子宮肉腫に典型的な核分裂像や異型細胞、凝固壊死像は認めなかった。以上より肉眼的所見並びに組織学的所見からCDLと診断した。術後2年間、再発することなく経過している。

考 案

子宮平滑筋腫瘍は産婦人科医が最も多く診察する良性婦人科腫瘍である。一般的な平滑筋腫は白色調の境界明瞭な結節であり、断面は束状の構造が渦巻くように錯綜している。子宮筋腫には多くの亜型が存在することが知られており、CDLもその一つである。その歴史は比較的浅く、1996年にRoth et al.により多結節・多分葉の腫瘍が子宮外へ進展する形態が胎盤葉(Cotyledon)に肉眼的に類似することから名付けられた¹⁾。以降PubMed上での報告は96例のみであり、稀な疾患である。しかし、WHO分類の子宮筋腫の組織学的分類や子宮体癌取り扱い規約 病理編においてもCDLについての記載があり、婦人科医はCDLを正しく認識する必要がある。

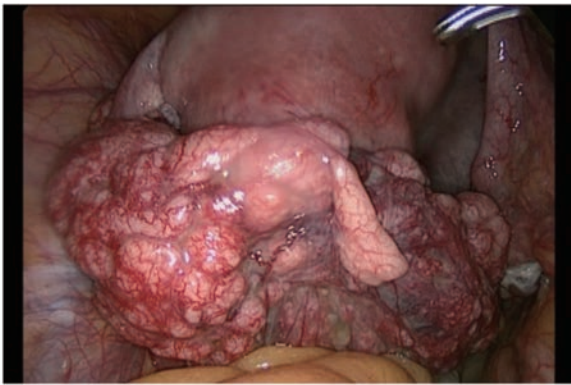


図4 腹腔内所見1

子宮は超手拳大に腫大。左の子宮後壁より子宮外に発育する小腫瘍の集合体を認める。弾性軟。腫瘍の表面は小血管が増生している。



図5 腹腔内所見2

子宮漿膜下から骨盤漏斗靭帯を這う様にして進展する小腫瘍を認める。

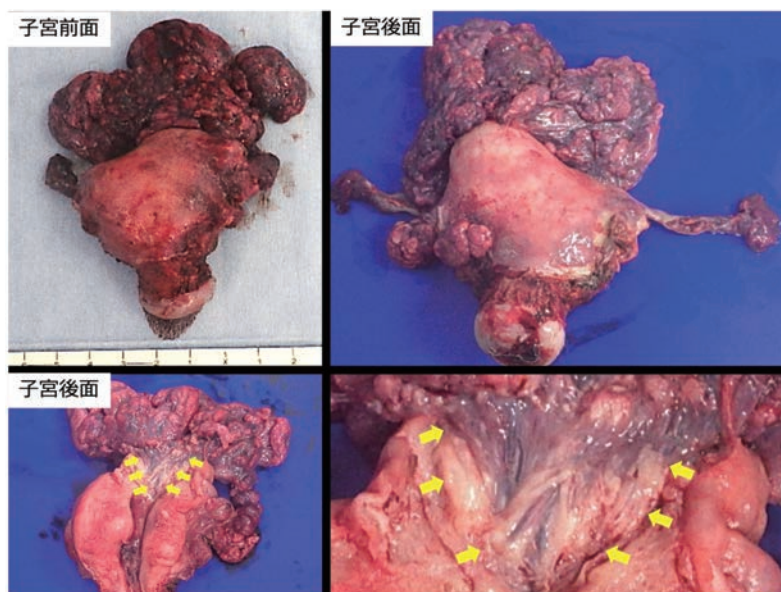


図6 摘出標本

子宮後壁筋層内から増生する腫瘍を認め、肉眼的には胎盤に類似している。MRIで茎状構造物を呈していた部位には黄白色の筋腫とその内側に増生する小血管の束を認める(黄色矢印)。

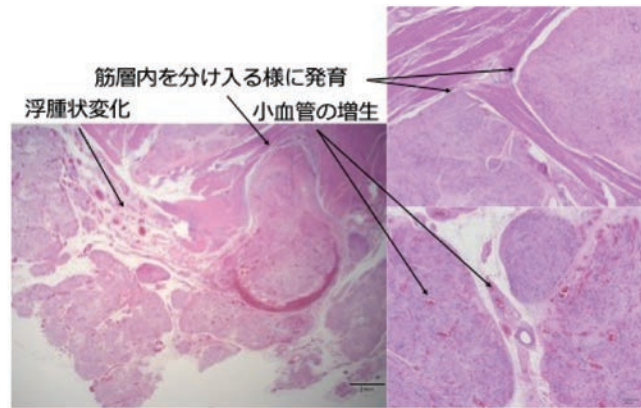


図7 HE組織像

小腫瘍は紡錘型細胞が束を成して錯綜・増生し、筋層内を切り裂く様にして発育している。小血管の増生と間質の浮腫状変化を認める。

94例のCDLをまとめたBuonomo et al.の報告によると、その発症年齢は21歳から73歳（中央値：44歳）であり、主訴は通常の子宮筋腫と同様で腹部膨満感、月経異常、下腹部痛の順に多い。腫瘍径は4 cmから41cm（中央値12cm）であり、高齢になるほど腫瘍径が縮小する傾向にある³⁾。腫瘍マーカーはCA125が僅かに上昇するのみでLDHの上昇は認めない⁴⁾。これまで多くの報告で、術前にCDLと子宮悪性腫瘍との鑑別が困難であったとされている²⁻⁵⁾。これは、CDLが比較的巨大な不整形腫瘍を呈し、子宮筋層との境界が不明瞭なまま子宮外へ進展することに起因する。CDLの鑑別疾患としては、富細胞平滑筋腫、水腫状平滑筋腫、類粘液平滑筋腫などの変性子宮筋腫、子宮平滑筋肉腫などがあげられるが、鑑別方法は他の筋腫と同様にMRIで行われることが多い。子宮平滑筋肉腫を考慮すべきMRIの所見としては、辺縁の強い不整、周囲への浸潤、転移、広範な出血・壊死を反映するT1強調像での淡い高信号、広い造影不良域、T2強調像での低信号から高信号の多彩な信号および強い内部不均一、強い拡散制限などが報告されている⁶⁻⁷⁾。CDLは変異型を伴うこともあり、静脈内平滑筋腫症を伴うものが4例⁸⁾、転移性平滑筋腫を伴うものが6例、水腫状平滑筋腫を伴うものが14例⁹⁻¹⁰⁾、類上皮平滑筋腫を伴うものが4例、脂肪平滑筋腫を伴うものが1例報告されている³⁾。これらの非典型的所見を認める際は、術前に筋腫と悪性腫瘍との鑑別を行うことは非常に困難となる。本症例では、辺縁不整は認めたものの、明らかに小腫瘍の集積であることがMRI上明確であり、出血や壊死を示唆する所見がなかったこと、拡散制限を認めなかったこと、筋層内から子宮外への特徴的な発育様式を捉えることができたことから、術前の診断は比較的容易であったと考えられる。

術前診断で悪性腫瘍の可能性が極めて低いと判断できる症例においては、腹腔鏡での手術が行われることが多

い¹¹⁾。CDLは子宮漿膜下から広間膜内に発育し、小腫瘍が連なる様に進展する特徴があるため、手術では腫瘍の完全摘出が必要となる。発症年齢から子宮全摘術が選択されることが多いが、妊孕性温存が必要な症例で悪性腫瘍の可能性が極めて低いと判断できる症例においては子宮筋腫核出術も選択されている。術後の再発は子宮全摘術では75例中2例、子宮筋腫核出術では19例中1例において認めているが、再発症例はいずれも筋腫の不完全摘出症例である³⁾。そのため術前評価では、腫瘍を取り残さないよう子宮外へ進展したCDLの個数、位置を把握することが肝要となる。術前に悪性腫瘍の可能性を否定できない妊孕性温存症例においては、術中迅速病理診断が手術方針を決定する一助となる¹²⁾。

結 語

非常に稀ではあるが、典型的な所見を呈するCDLに対し腹腔鏡下子宮全摘術を施行した症例を経験した。子宮筋層から子宮外に発育する辺縁不整な腫瘍を認める際には、CDLを念頭に置き治療方針を決定する必要がある。

文 献

- 1) Roth LM, Reed RJ, Sternberg WH. Cotyledonoid dissecting leiomyoma of the uterus. The Sternberg tumor. *Am J Surg Pathol* 1996; 20: 1455-1461.
- 2) 丸山俊輔, 吉岡信也, 八木治彦, 鈴木彩子, 万代昌紀, 樋口壽宏, 高倉賢二, 小西郁生. 悪性卵巣腫瘍との鑑別診断に苦慮したcotyledonoid dissecting leiomyomaの1例. *産婦の進歩* 2009; 61(1): 7-12.
- 3) Buonomo F, Bussolaro S, Fiorillo CA, Giorda G, Romano F, Biffi S, Ricci G. The management of the cotyledonoid leiomyoma of the uterus: A narrative review of the literature. *Int J Environ Res Public Health* 2021; 18(16): 8521.

- 4) Buonomo F, Bussolaro S, Giorda G, Romano F, Biffi S, Ricci G. Cotyledonoid leiomyoma clinical characteristics, imaging features, and review of the literature. *J Ultrasound Med* 2020; 40: 1459-1469.
- 5) Chawla I, Bhardwaj M, Sareen N, Khattar N. Epithelioid cotyledonoid leiomyoma of uterus. *BMJ Case Rep* 2014; 2014: bcr2013202434.
- 6) Tamai K, Koyama T, Saga T, Morisawa N, Fujimoto K, Mikami Y, Togashi K. The utility of diffusion-weighted MR imaging for differentiating uterine sarcomas from benign leiomyomas. *Eur Radiol* 2008; 18: 723-730.
- 7) Jordan LB, Al-Nafussi A, Beattie G. Cotyledonoid hydropic intravenous leiomyomatosis: A new variant leiomyoma. *Histopathology* 2002; 40: 245-252.
- 8) Kashima J, Tonooka A, Taguchi A, Funata N, Yasugi T, Hishima T. A Cotyledonoid dissecting leiomyoma with an intravascular component and adenomyosis accompanied with possible multiple lung metastases: A case report. *Hum Pathol Case Rep* 2019; 15: 79-82.
- 9) Sellami R, Nasfi A, Doghri R, Nesrine M, Sassi S, Charfi L, Mrad K, Romdhane K.B. Cotyledonoid dissecting leiomyoma of the uterus. A report of four cases. *J Gynecol Surg* 2013; 29: 23-26.
- 10) Maimoon S, Wilkinson A, Mahore S, Bothale K, Patrikar A. Cotyledonoid leiomyoma of the uterus. *Indian J Pathol Microbiol* 2006; 49: 289-291.
- 11) Tanaka H, Toriyabe K, Senda T, Sakakura Y, Yoshida K, Asakura T, Taniguchi H, Nagao K. Cotyledonoid dissecting leiomyoma treated by laparoscopic surgery: A case report. *Asian J Endosc Surg* 2013; 6: 122-125.
- 12) Yel H, Qil X, Tianl Y, Yang K, Zuo X, Pengl Z. Case report: cotyledonoid dissecting leiomyoma in a 49-year-old woman. *Transl Cancer Res* 2022; 11: 4189-4193.

【連絡先】

藤村 大志
山口大学大学院医学系研究科産科婦人科学講座
〒755-8505 山口県宇部市南小串 1-1-1
電話：0836-22-2288 FAX：0836-22-2287
E-mail：taishif0122@gmail.com

