

卵管捻転を契機に診断した自然発生性異所性平滑筋腫の1例

甲谷 秀子¹⁾・金子 久恵²⁾・田坂 美恵²⁾

1) 市立宇和島病院 産婦人科

2) 松山まどんna病院 産婦人科

Spontaneous parasitic leiomyoma with isolated fallopian tube torsion

Hideko Kotani¹⁾ · Hisae Kaneko²⁾ · Mie Tasaka²⁾

1) Department of Obstetrics and Gynecology, Uwajima City Hospital

2) Department of Obstetrics and Gynecology, Matsuyama Madonna Hospital

異所性平滑筋腫 (parasitic leiomyoma: PL) は、病理組織学的には子宮筋腫と同じ平滑筋腫であるが、子宮と連続性を持たず、付着している他の腹腔内臓器から栄養される稀な良性腫瘍である。発生原因により医原性と自然発生性に分類されるが、自然発生性異所性平滑筋腫は特に稀である。今回、手術時に、卵管捻転を伴う自然発生性異所性平滑筋腫と診断した症例を報告する。症例は59歳女性、4妊2産、閉経45歳。腹部手術の既往はない。突然の下腹部痛を主訴に当院を受診した。10年前に当院で子宮後方の漿膜下筋腫を指摘され経過観察していたが、筋腫は次第に縮小し無症状であった。今回の受診時に施行した経腔超音波検査およびMRI検査では、筋腫は子宮後方には認められず、代わって子宮前方左側に類似した腫瘍を認めた。腫瘍の部位に一致して圧痛を認めたことから、漿膜下子宮筋腫の捻転を疑い、腹腔鏡下手術を施行した。術中所見では、腫瘍は子宮との連続性を認めず、大網に被覆されていた。腫瘍と大網の瘻着部分を剥離する過程で、左側卵管が腫瘍と大網の間に挟まれ、720度の捻転を生じていることが確認できた。大網を完全に剥離した後、腫瘍が摘出された。また、捻転した卵管には著明な浮腫を認めたため切除を行った。病理組織学的検査では、摘出した腫瘍は壊死性変化を伴う平滑筋腫であり、また卵管には鬱血および浮腫が認められた。これらから卵管捻転を伴う自然発生性異所性平滑筋腫と診断した。これまでに本邦では、異所性平滑筋腫による腸閉塞や、茎捻転による急性腹症の報告はあるが、卵管単独の捻転による急性腹症の報告は本症例が初めてである。本症例は、何らかの原因により子宮から遊離した筋腫を大網が被覆する過程で卵管が捻転を生じ、急性腹症として発症したものと考えられる。漿膜下筋腫を有する症例において急性腹症を呈した場合には、自然発生性PLの可能性を念頭に置く必要がある。

A parasitic leiomyoma is a rare benign tumor that is not continuous with the uterus and derives its blood supply from adjacent organs. We report a case of spontaneous parasitic leiomyoma diagnosed intraoperatively during surgery for fallopian tube torsion. A 59-year-old postmenopausal woman with a history of uterine leiomyoma under follow-up at our hospital presented with acute lower abdominal pain. She had no history of abdominal surgery. Imaging did not show a previously identified uterine leiomyoma but instead revealed a similar tumor in a different location. Because localized tenderness corresponded to the tumor, torsion of a leiomyoma was suspected, and laparoscopic surgery was performed. Intraoperatively, the tumor was found to be separate from the uterus and covered by the omentum. The fallopian tube was twisted 720 degrees between the tumor and the omentum. The tumor and the left fallopian tube were removed. Histopathological examination confirmed that the excised tumor was a leiomyoma with necrotic changes, and the fallopian tube showed congestion and edema. Based on these findings, the patient was diagnosed with spontaneous parasitic leiomyoma with isolated fallopian tube torsion. To our knowledge, this is the first reported case of parasitic leiomyoma with tubal torsion in Japan. Parasitic leiomyoma should be considered as a differential diagnosis in patients with an acute abdomen and a history of subserosal myoma.

キーワード：異所性平滑筋腫、自然発生性異所性平滑筋腫、卵管捻転、腹腔鏡手術

Key words : parasitic leiomyoma, spontaneous parasitic leiomyoma, fallopian tube torsion, laparoscopic surgery

緒 言

異所性平滑筋腫 (parasitic leiomyoma: PL) は、組織学的には子宮筋腫と同じ平滑筋腫であるが、子宮と連続性を持たず、付着している他の腹腔内臓器から栄養される稀な良性腫瘍である^{1, 2)}。その発生原因により医原性

と自然発生性の2つに大別される。医原性では、子宮筋腫核出術時の細切による筋腫破片を原因とする報告が多い³⁾。自然発生性のPLは、医原性よりもさらに頻度が低く、本邦では約30例が報告されている⁴⁾。異所性平滑筋腫の画像診断は困難であり、急性腹症や腸閉塞を契機に緊急手術を行った際に診断されることが多い。今回、

急性腹症を発症し、手術時に卵管捻転を伴う自然発生性PLと診断した症例を報告する。

症 例

59歳女性、4妊2産、閉経45歳。手術歴なし。10年前に当院で $50 \times 50\text{mm}$ の漿膜下子宮筋腫を指摘され(図1 A, B)、定期経過観察を受けていたが、筋腫は次第に縮小していた。突然の下腹部痛を主訴に、2年ぶりに当院を受診した。来院時所見は体温 36.8°C 、血圧 $128/56$ 、脈拍84回/分、呼吸数17回/分、下腹部中央から左側に圧痛を認めた。血液検査では白血球数 $8,340/\mu\text{l}$ 、Hb 12.4g/dl 、血小板数 $26.8\text{万}/\mu\text{l}$ 、CRP 0.7mg/dl であった。経腔超音波検査では、子宮前方左側に $40 \times 40\text{mm}$ の腫瘍を認めた。これまで経過観察していた子宮後方の子宮筋腫は指摘できなかった。骨盤腔MRI検査を施行したところ、以前から指摘していた子宮筋腫は認められず、子宮前方左側にT1強調画像で低信号、T2強調画像では内部に高信号領域を含む $40 \times 35\text{mm}$ の筋腫様腫瘍を認めた(図1 C, D, E)。

既知の子宮筋腫が後方から前方に移動したと判断し、漿膜下筋腫の茎捻転による急性腹症と診断して、腹腔鏡下手術を行った。術中所見では、子宮前方左側の腫瘍は子宮との連続性を認めず、大網に被覆されていた(図2 A)。腫瘍と大網の癒着部分を剥離する過程で、左側卵管が腫瘍と大網の間に挟まれ、腫瘍に巻き付くように720度の捻転を生じていることが確認できた(図2 B, C)。大網を完全に剥離した後、腫瘍が摘出された(図2 C)。捻転していた卵管には著明な浮腫を認めたため、切除を行った。卵巣には異常所見を認めなかった。手術時間は1時間28分、出血量は30gであった。摘出した腫瘍は柔らかく、剖面は暗赤色を呈していた。また、卵管は浮腫状であった(図3 A, B)。病理組織学的検査では、摘出した腫瘍は壊死性変化を伴う平滑筋腫であり、また卵管には鬱血および浮腫が認められた。これらから卵管単独の捻転を伴う自然発生性異所性平滑筋腫と診断した。術後経過は良好で、術後6日目に退院した。

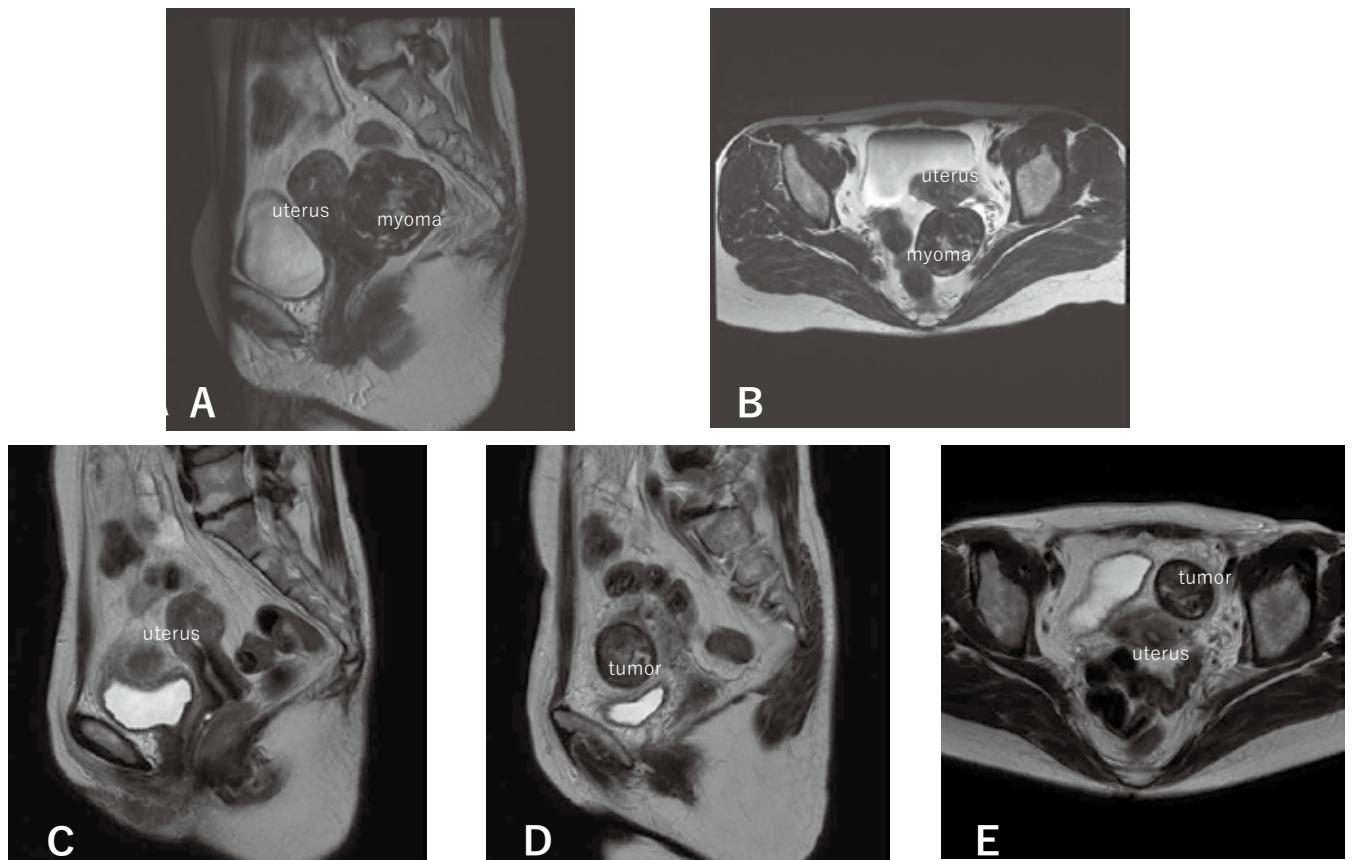


図1 MRI T2強調画像

- A : 約10年前：子宮後方左側に、内部にひび割れ状の高信号領域を呈する $50 \times 50\text{mm}$ の漿膜下子宮筋腫を認めた
- B : 約10年前：子宮後方の漿膜下子宮筋腫は、茎は描出できないが高度の突出を認めた
- C : 今回：子宮後方左側に子宮筋腫は指摘できなかった
- D : 今回：子宮前方左側に、内部に高信号領域を含む $40 \times 35\text{mm}$ の筋腫様腫瘍を認めた
- E : 今回：子宮前方の筋腫様腫瘍と子宮との連続性は指摘できなかった

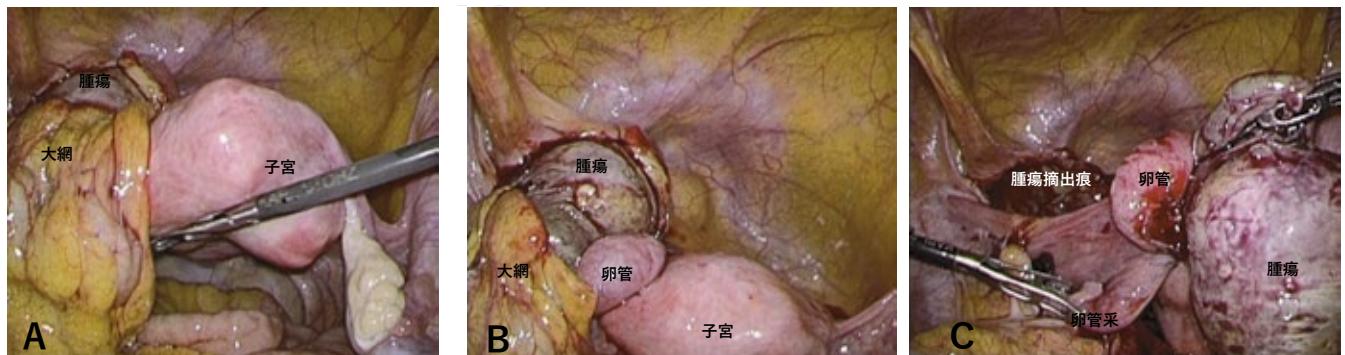


図2 術中腹腔内所見

A : 子宮前方左側の腫瘍は子宮と連続性がなく、大網に被覆されていた

B : 腫瘍と大網の癒着を一部剥離すると、左側卵管が腫瘍と大網に挟まれ腫瘍に巻き付くように720度捻転していた

C : 大網を完全に剥離した後、腫瘍が摘出された。卵管は捻転したまま腫瘍に癒着していた

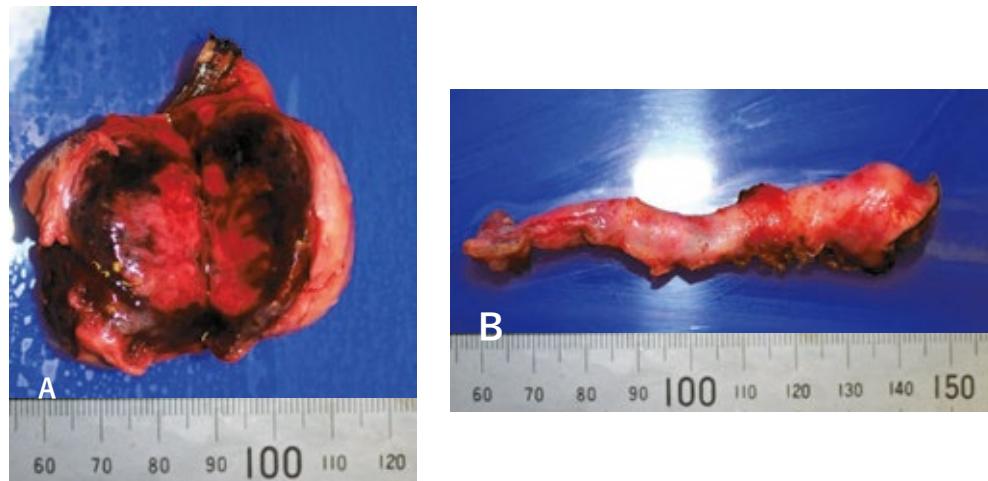


図3 摘出標本

A : 腫瘍は柔らかく、剖面は暗赤色を呈していた
B : 卵管に著明な浮腫を認めた

考 案

PLは、1909年にKellyとCullenによって提唱された稀な疾患である²⁾。病理組織学的には子宮筋腫と同じ平滑筋腫であるが、PLは子宮との連続性を持たず、他の腹腔内臓器に付着し、そこから栄養される。PLの発生機序については諸説あるが⁵⁾、漿膜下有茎性平滑筋腫が茎部の捻転により子宮から遊離し、周囲臓器に付着して、新たな栄養血管を獲得して生着するという説が有力である⁶⁾。特に、Brodyは自然発生性PLの血流供給源は大部分が大網であったと報告している⁷⁾。本症例においても、術中に、PLを被覆する大網を剥離する際に、剥離面から微細な出血を認め、また、他に明らかな栄養血管を認めなかつたことから、腫瘍は大網から栄養を得ていたと考えられた。発生機序として、筋腫の遊離が先行したのか、大網による被覆が先行したのかは不明であるが、発症までの期間は最終受診から2年以内と推定された。

PLの臨床症状は非特異的であり、その大きさや発生部位により異なる。小さな腫瘍であれば無症状のまま経過することもあるが、巨大腫瘍となった場合には周囲臓器の機能障害を引き起こす可能性があり、大きさに関わらず急性腹症を呈することもある。また発生部位により穿孔や炎症を来す例も報告されている⁸⁻¹⁹⁾。現在、PLに対する治療は外科的完全切除が基本であり、腹腔鏡手術または開腹手術が選択される¹⁰⁾。本症例では、急性腹症を発症したため緊急手術を施行したが、原因是PLを被覆する大網に卵管が巻き込まれ、720度の捻転を生じたためと考えられた。さらに、妊娠や閉経に伴う血流変化が、漿膜下筋腫の遊離を引き起こす一因であるとする報告もある^{9, 10, 16)}。日本国内では、PLに起因した急性腹症に対して緊急手術が行われた症例はこれまでに9症例が報告されている(表1)¹¹⁻¹⁹⁾。内訳は、腸閉塞3例、腫瘍および栄養血管の捻転(疑いを含む)2例、腫瘍の変性および炎症2例、子宮付属器の捻転1例、腫瘍による腸管の牽引によるもの1例であった。本症例は、

表1 本邦におけるparasitic leiomyomaに起因した急性腹症に対する緊急手術症例報告

報告年	報告者	年齢(歳)	症状	発育部位	症状の原因	手術術式
2010	井上ら ¹¹⁾	49	下腹部痛	膀胱腹膜、大網	腫瘍の変性および炎症	子宫全摘術 腫瘍摘出術
2012	石野ら ¹²⁾	51	下腹部痛	回腸腸間膜	PLによる腸管の牽引	回腸部分切除術
2014	國見ら ¹³⁾	42	下腹部痛	大網,S状結腸間膜	PL栄養血管の捻転	腫瘍摘出術
2014	中川ら ¹⁴⁾	42	下腹部痛	大網, 左付属器	左付属器茎捻転	左付属器切除術 右卵巣囊腫切除術
2015	林ら ¹⁵⁾	43	下腹部痛	大網	PLの捻転	腫瘍摘出術
2016	Iida ら ¹⁶⁾	30	腹痛	大網	腫瘍の変性および炎症	腫瘍摘出術
2018	三宅ら ¹⁷⁾	44	下腹部痛	S状結腸	腸閉塞	腫瘍摘出術 S状結腸切除術
2019	吉川ら ¹⁸⁾	78	腹痛	回腸, 大網	腸閉塞	回腸部分切除術
2021	森本ら ¹⁹⁾	46	発熱, 嘔吐	大網, 小腸	腸閉塞	腫瘍摘出術 小腸切除術
2025	自験例	59	下腹部痛	大網	卵管単独の捻転	腫瘍摘出術 左卵管切除術

卵管単独の捻転を伴った初めての報告である。過去には腸閉塞に対し小腸部分切除を行った症例も報告されているが、いずれの症例においても術後経過は良好であり、合併症や後遺症は認められていない。本症例も同様に良好な術後経過をたどった。

PLは稀な疾患ではあるが、急性腹症を発症して緊急手術を要する可能性がある。PLを完全に摘出できれば、術後経過は一般に良好である。子宮筋腫核出術の既往がある症例だけでなく、漿膜下筋腫を有する症例においても、下腹部痛などの症状を呈した場合には、自然発生性PLの可能性を念頭に置く必要がある。

文 献

- 1) Kho KA, Nezhat C. Parasitic Myomas. *Obstet Gynecol* 2009; 114: 611-615.
- 2) Kelly HA, Cullen TS. Myomata of the Uterus. Philadelphia; WB Saunders, 1909.
- 3) Darii N, Anton E, Doroftei B, Ciobica A, Maftei R, Anton SC, Mostafa T. Iatrogenic parasitic myoma and iatrogenic adenomyoma after laparoscopic morcellation: A mini-review. *J Adv Res* 2019; 20: 1-8.
- 4) 津田竜広, 須田尚美, 眞嶋拓也, 廣兼綾華, 牛島倫世, 山崎悠紀. 腹腔鏡手術で診断した自然発生性異所性平滑筋腫茎捻転の一例. 日産婦内視鏡会誌 2021; 37: 97-103.
- 5) Nezhat C, Kho K. Iatrogenic myomas: new class of myomas? *J Minim Invasive Gynecol* 2010; 17: 544-550.
- 6) Marasioni MD, Tsarna E, Tsochrinis A, Chavez N, Georgopapadakos N. An Intraluminal Parasitic Leiomyoma of the Sigmoid Colon and Potential Pathogenetic Mechanisms. *Cureus* 2021; 13: e18451.
- 7) Brody S. Parasitic fibroid. *Am J Obstet Gynecol* 1953; 65: 1354-1356.
- 8) Laibangyang A, Law C, Gupta G, Da Dong X, Chuang L. Parasitic leiomyoma causing small bowel perforation: A case report. *Case Rep Womens Health* 2021; 32: e00349.
- 9) De Brakeleer E, Van Eeckhout E, Sahebali S, Cosyns S. Gigantic parasitic leiomyoma of 19kg in a postmenopausal woman: A case report and review of the literature. *J Obstet Gynaecol Res* 2021; 47: 2777-2781.
- 10) Osegui N, Oku EY, Uwaezuoke CS, Alawode KT, Afolabi SA. Huge Primary Parasitic Leiomyoma in a Postmenopausal Lady: A Rare Presentation. *Case Rep Obstet Gynecol* 2019; 1: e7683873.
- 11) 井上桃子, 上田和, 駒崎裕美, 佐藤陽一, 高橋一彰, 山本瑠伊, 土橋麻美子, 斎藤元章, 磯西成治. Parasitic Leiomyomaの1例. 日産婦東京会誌 2010; 59: 466-471.
- 12) 石野信一郎, 砂川宏樹, 大城直人. 小腸合併切除を要したparasitic leiomyomaの1例. 日臨外会誌 2012; 73: 1808-1812.
- 13) 國見聰子, 糸賀知子, 青井裕美. 栄養血管の捻転を

契機に診断されたParasitic Leiomyomaの1例. 埼玉産婦会誌 2014; 44: 113-116.

- 14) 中川侑子, 大熊克彰, 秦ひろか, 吉田彩子, 田中守, 鈴木直. Parasitic leiomyomaが原因で左付属器を茎捻転させた急性腹症の1例. 関東連産婦会誌 2014; 51: 107-112.
- 15) 林敏彦, 加藤弘毅, 谷村慶一. 大網腫瘍の捻転を契機に発症したParasitic leiomyomaの1例. 臨放 2015; 60: 456-459.
- 16) Iida M, Ishikawa H, Shozu M. Spontaneous parasitic leiomyoma in a post-partum woman. J Obstet Gynaecol Res 2016; 42: 1874-1877.
- 17) 三宅龍太, 永井景, 松原翔, 小川憲二, 安川久吉, 赤田忍. 腸閉塞を契機に発見されたparasitic leiomyomaの1例. 産婦の進歩 2018; 70: 296-304.
- 18) 吉川弘太, 濱田信男, 本高浩徐, 中村登. 自然発生性Parasitic Leiomyomaの2例. 日臨外会誌 2019; 80: 569-574.
- 19) 森本喜博, 浅井大. 絞扼性腸閉塞を契機に発見されたParasitic Leiomyomaの1例. 日腹部救急医会誌 2021; 41: 536-536.

【連絡先】

甲谷 秀子
市立宇和島病院産婦人科
〒 798-8510 愛媛県宇和島市御殿町 1-1
電話 : 0895-25-1111 FAX : 0895-25-5334
E-mail : hkotani@uwajima-mh.jp

