

Intravenous Leiomyomatosisの一例

早坂和正、田中良明、矢野希代志、藤井元彰、
奥畑好孝、氷見和久、根岸七雄*

日本大学医学部放射線医学教室、*第二外科学教室

A case of Intravenous Leiomyomatosis

Kazumasa Hayasaka, Yoshiaki Tanaka, Kiyoshi Yano, Motoaki Fujii,
Yoshitaka Okuhata, Kazuhisa Himi, Nanao Negishi*

Department of Radiology and Surgery*, Nihon University School of Medicine

Abstract

Intravenous leiomyomatosis, also called benign leiomyoma, is a rare tumor that originates from a uterine myoma and spreads intravenously. We report the case of a 62-year-old women with a uterine leiomyoma which through a right uterine vein progressed along the inferior vena cava up to the lower right atrium. We describe the findings of CT and MRI on such lesions and discuss its usefulness in diagnostic imaging.

はじめに

Intravenous leiomyomatosisは、非常に稀な良性疾患で、子宮筋腫から由来し内腸骨静脈叢を経て下大静脈や心臓に進展すると言われ、1975年にNorrisやParmley¹⁾によって初めて本症が定義された。

今回、われわれは子宮筋腫があり右内腸骨静脈、下大静脈、右房下縁まで腫瘍が進展したIntravenous leiomyomatosisの一例を経験したのでそのCTとMRI所見を報告する。

症 例

症例は62歳、女性。

主 訴：両下肢腫脹

家族歴：特記事項なし

既往歴：1967年卵巣出血で卵巣摘出術

臨床経過：1996年6月頃より右下肢腫脹を認めたが近医にて保存的治療を受けていた。8月になり両下肢腫脹を認めるようになったが経過観察されていた。1997年4月に両下肢腫脹が改善しないため当院受診し、精査のため入院となった。

現 症：貧血、黄疸なし。心音は第四肋間左縁にGr2/Vの収縮期雑音を聴取した。腹部は臍下部に小児頭大の弾性硬の腫瘍を触知し、両下肢に浮腫を認めた。

臨床検査成績：赤血球350万/ μ l、Hb 10.3g/dl、Ht 30.5%と軽度貧血、LDH 1119 IU/lと著明上昇、腫瘍マーカー (AFP、CEA、CA 19-9)は正常値であった。画像所見：CT所見では骨盤内に約10cm大の辺縁明瞭内部不均質性の筋組織と等濃度の腫瘍を認めた。腫瘍は右内腸骨静脈から右房下縁の下大静脈まで進



図1a 骨盤内CT:子宮(矢頭)と連続した内部不均質な腫瘍(短矢)、内腸骨静脈内腫瘍(長矢)を認める。

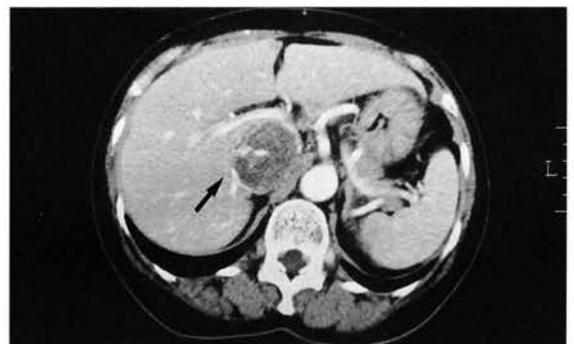


図1b 腹部CT:下大静脈内に内部不均質な腫瘍(長矢)を認める。

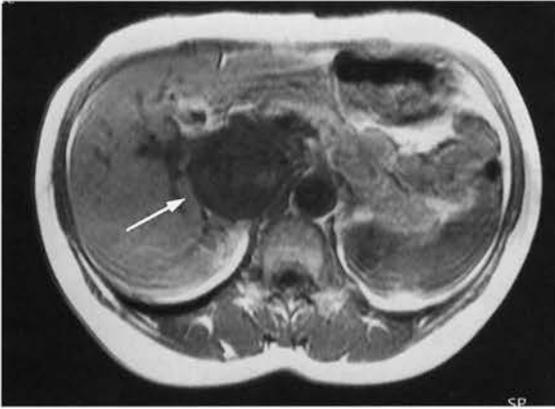


図2a

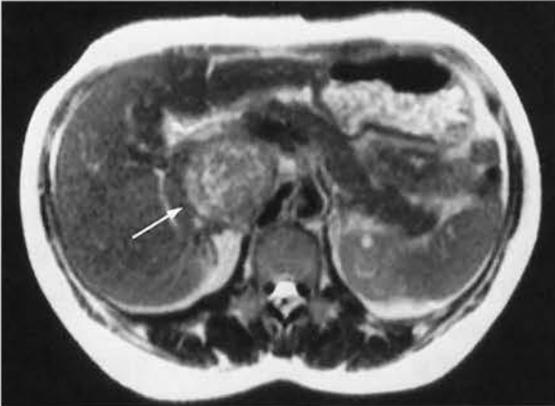


図2b

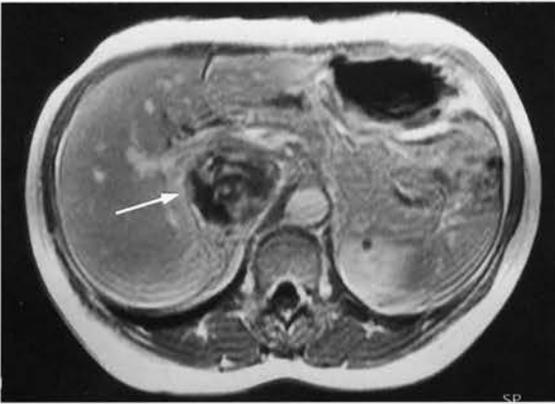


図2c

図2.a-c.横断腹部MRI: 下大静脈内に内部不均質な腫瘍(長矢)を認める。T1強調画像(FLASH-2D TR/TE/flip angle 100/4.1/80)で軽度低信号(a)、T2強調画像(turboSE TR/TE/flip angle 100/4.1/80)で高信号(b)、Gd-enhanced MRI(c)で不整な造影を認める。



2-d

冠状断MRI: T2強調画像(true FISP TR/TE/flip angle 6.3/3.0/70)冠状断で骨盤内に不均質な腫瘍(長矢)、内腸骨静脈(矢頭)、下大静脈内(短矢)に腫瘍を認める。



2-e

矢状断造影MRI(FLSH 2D with FS TR/TE/flip angle 71/4.2/60): 不均質に造影される骨盤内腫瘍(長矢)と下大静脈内腫瘍(矢頭)を認める。

展していた(図1a,b)。MRI所見では骨盤内に約10cm大の辺縁明瞭内部で不均質性の右内腸骨静脈から右房下縁の下大静脈まで進展する腫瘍を認めた。T1強調画像で骨盤内および下大静脈内に内部不均質性の筋組織より軽度低信号、T2強調画像で内部不均質性の高信号、Gd-enhanced T1強調画像で不整な造影効果のある腫瘍を認めた。冠状断では骨盤内腫瘍と右内腸骨静脈から右房下縁の下大静脈に到る連続性の腫瘍性病変が描出された(図2a-e)。

右総腸骨動脈造影では動脈相で骨盤内腫瘍と下大静脈内の腫瘍にtumor stainを認め、静脈相で内腸骨静脈と下大静脈の閉塞のため、閉鎖静脈から下腹壁静脈への側副血行路を認めた(図3)。

以上より、子宮筋腫と筋腫の静脈内浸潤が考えられ、Intravenous leiomyomatosisと診断された。組織学的診断では、超音波ガイド下で骨盤内腫瘍と下大静脈内の腫瘍の生検を行い、異型性に乏しい平滑筋由来の腫瘍と診断され、Intravenous leiomyomatosisと確認された。

考案

Intravenous leiomyomatosis は1896年にBisch-Hirschfeld²⁾が初めて報告し、1903年にKnauer³⁾および1911年にSitzenfrey⁴⁾は子宮筋腫があり子宮静脈内の腫瘍が血管外の筋腫細胞と連続性があることを示し、本症が平滑筋腫細胞の血管内浸潤により成長したものと結論した。1975年にNorrisら¹⁾は本症の組織学的検索を行い、Knauer、Sitzenfreyの説の他、静脈壁から生じた平滑筋腫が静脈内に成長進展したものに加え、本症は「子宮筋腫あるいは静脈壁から生じた組織学的に良性の平滑筋腫が静脈内に成長進展したもの」と定義されるようになった。

診断は子宮筋腫の存在や子宮筋腫切除の既往があり、静脈内や心臓内に腫瘍を認めることで比較的容易であり、超音波検査、CTやMRI検査などが腫瘍の存在診断に有用である。MRIは本症例の如く、内腸骨静脈から心臓まで連続性のある場合に、矢状断や冠状断など任意の断面で撮像が可能なので特に有用と考えられる。

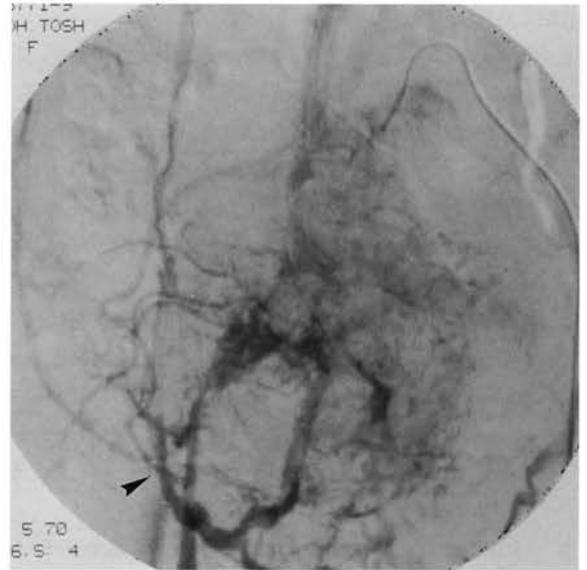


図3 右総腸骨動脈造影静脈相:右内腸骨静脈、右総腸骨静脈および下大静脈の閉塞と閉鎖静脈から下腹壁静脈への側副血行(矢頭)を認める。

本症例では骨盤内に子宮筋腫を認め内腸骨静脈、下大静脈から右房下縁に到る連続性の腫瘍がMRIで確認されたことから、腫瘍の成因は子宮筋腫の血管内播種と診断され、生検により確認された。

このように腫瘍が下大静脈より、心臓内にまで発育していたIntravenous leiomyomatosisは現在まで約30例の報告があるが⁵⁻⁹⁾、この他に平滑筋肉腫でも同様の進展を呈することがあるといわれているが¹⁰⁾、本症との鑑別は画像診断では難しく組織学的診断は不可欠であると考えられる。又、Wilms腫瘍でも同様に静脈内に進展発育を呈するとの報告があるが¹¹⁾、本症との鑑別は腎腫瘍の画像検査による検出能が優れていることから比較的容易であると考えられる。

結語

62歳、女性で子宮筋腫があり内腸骨静脈より下大静脈全域、右房下縁に到るIntravenous leiomyomatosisの一例を経験したので、そのCT、MRI像を中心に報告した。

REFERENCES

1. Norris HJ, Parmley T. Mesenchymal tumors of the uterus V Intravenous leiomyomatosis. A clinical and pathological study of 14 cases. *Cancer* 36: 2168-2178, 1975
2. Birsh-Hirschfeld FV. *Lehrbuch der Pathologischen Anatomie* 5th Ed Leipzig FC. W Vogel I: 226,1896.
3. Knauer E. Beitrag zur Anatomie der Uterusmyome. *Beitr z Geburtsh u Gynaek* 1: 695,1903
4. Sitzenfrey A. Uber Venenmyome des Uterus mit intravaskulaerem Wachstum. *Ztschr f Geburtsh u Gynaek* 68: 1,1911
5. Casillas JA, Lobato J, Llamas P et al. Intracardiac extension of intravenous leiomatosis. A case report. *J Cardiovasc Surg* 38: 83-86,1997
6. Nakayama Y, Kitamura S, Kawachi K et al. Intravenous leiomyomatosis extending into the right atrium. *Cardiovascular surgery* 2: 642-645,1994
7. Tierny WM, Ehrlich CE, Bailey JC et al. Intravenous leiomyomatosis of the uterus with extension into the heart. *Am J Med* 69: 471-475,1980
8. Ariza A, Cerra C, Hahn IS et al. Intravascular leiomyomatosis of the uterus: a case report. *Con Med* 46: 700-703,1982
9. Kaszar-Seibert DJ, Gaubin GP, Rogoff PA et al. Intracardiac extension of intravenous leiomyomatosis. *Radiology* 168: 409-410,1988
10. Wray RC Jr, Daukins H. Primary smooth muscle tumors of the inferior vena cava. *Ann Surg* 174: 1009-1018,1971
11. Utley JR, Mobin-Uddin K, Segnitz RH et al. Acute obstruction of tricuspid valve by Wilms' tumor. *J Thorac Cardiovasc Surg* 66: 626-628,1973

ダウンロードされた論文は私的利用のみが許諾されています。公衆への再配布については下記をご覧ください。

複写をご希望の方へ

断層映像研究会は、本誌掲載著作物の複写に関する権利を一般社団法人学術著作権協会に委託しております。

本誌に掲載された著作物の複写をご希望の方は、(社)学術著作権協会より許諾を受けて下さい。但し、企業等法人による社内利用目的の複写については、当該企業等法人が社団法人日本複写権センター（(社)学術著作権協会が社内利用目的複写に関する権利を再委託している団体）と包括複写許諾契約を締結している場合にあっては、その必要はございません（社外頒布目的の複写については、許諾が必要です）。

権利委託先 一般社団法人学術著作権協会

〒107-0052 東京都港区赤坂 9-6-41 乃木坂ビル 3F FAX：03-3475-5619 E-mail：info@jaacc.jp

複写以外の許諾（著作物の引用、転載、翻訳等）に関しては、(社)学術著作権協会に委託致しておりません。

直接、断層映像研究会へお問い合わせください

Reprographic Reproduction outside Japan

One of the following procedures is required to copy this work.

1. If you apply for license for copying in a country or region in which JAACC has concluded a bilateral agreement with an RRO (Reproduction Rights Organisation), please apply for the license to the RRO.

Please visit the following URL for the countries and regions in which JAACC has concluded bilateral agreements.

<http://www.jaacc.org/>

2. If you apply for license for copying in a country or region in which JAACC has no bilateral agreement, please apply for the license to JAACC.

For the license for citation, reprint, and/or translation, etc., please contact the right holder directly.

JAACC (Japan Academic Association for Copyright Clearance) is an official member RRO of the IFRRO (International Federation of Reproduction Rights Organisations).

Japan Academic Association for Copyright Clearance (JAACC)

Address 9-6-41 Akasaka, Minato-ku, Tokyo 107-0052 Japan

E-mail info@jaacc.jp Fax: +81-33475-5619