

症例報告

傍大動脈リンパ節子宮内膜症の一例

藤井 歌倫* 川上 敬子 宮本 真豪
明樂 一隆 三澤 亜純 中尾紗由美
田内麻依子 宮村 知弥 中 林 誠
丸山 大介 中山 健 佐々木 康
森 岡 幹

抄録：子宮内膜症のリンパ節での発生は稀少部位子宮内膜症とされている。子宮内膜症のリンパ節病変は骨盤内リンパ節が多く、骨盤内の深部子宮内膜症を伴うことが多い。今回、深部子宮内膜症を伴わない傍大動脈リンパ節子宮内膜症の一例を経験した。症例は44歳、過多月経による貧血のため、当科へ紹介となった。MRI検査で子宮腺筋症および子宮筋腫を認めた。子宮筋腫は8.7 cm大で、拡散強調画像で軽度高信号とADC mapで一部低信号を呈したため悪性を否定できなかった。全身検索のため造影CT検査を施行したところ、多発肺動脈血栓と左下肢静脈血栓、12×25 mm大の嚢胞状に腫大した右傍大動脈リンパ節を認めた。抗凝固療法および下大静脈フィルター留置後に腹式子宮全摘術と両側卵管摘出術と右傍大動脈リンパ節生検を施行した。術中所見では、骨盤および腹腔内に内膜症病変を認めなかった。術後病理診断では、子宮筋腫と子宮腺筋症に悪性所見を認めなかった。腫大リンパ節に内膜症病変を認めた。子宮内膜細胞がリンパ管や血管を介して骨盤外臓器に出現することが報告されていることを考慮すると、孤立したリンパ節に子宮内膜症が発生したものと考えられた。今回は偶発的に発見されたが、嚢胞状に腫大したリンパ節病変を認めた場合、悪性疾患によるリンパ節転移のほかにリンパ節子宮内膜症を考慮する必要がある。

キーワード：子宮内膜症，傍大動脈リンパ節

緒 言

子宮内膜症は主に骨盤内臓器、特に子宮と卵巣、ダグラス窩周囲の腹膜に発生する。骨盤外への発生は全体の約12%を占め、稀にリンパ節などの稀少部位にみられる^{1,2)}。リンパ節子宮内膜症は、骨盤内の深部子宮内膜症を伴うことが多いとされる³⁻⁵⁾。今回、子宮腺筋症以外に骨盤内に子宮内膜症を認めず、傍大動脈リンパ節にのみ子宮内膜症病変を認めた症例を経験したので報告する。

症 例

44歳，経産婦（1妊1産）。既往歴，家族歴に特記事項はない。左下肢に違和感を自覚し，近医整形

外科を受診した。D-dimer 1.8 µg/mlと軽度高値，Hb 6.1 g/dlと重症貧血を認めたため当院内科に紹介された。濃厚赤血球4単位輸血され，精査の結果内科的疾患は否定された。以前より過長月経および過多月経を認め，数年前より子宮筋腫を指摘されていたことから当科に紹介された。

身長156 cm，体重54 kg，血圧124/70 mmHg，脈拍86/分。内診では子宮は小児頭大に腫大し，可動性不良であった。経腔超音波断層法で，子宮後壁に子宮筋腫と思われる9×12 cm大の腫瘤性病変を認めた。WBC 8,880/µl，Hb 12.6 g/dl，Plt 374,000/µl，APTT 26.3 sec，PT-INR 1.07，D-dimer ≤ 1.0 µg/ml，BUN 10.5 mg/dl，Cr 0.72 mg/dl，T-Bil 0.4 mg/dl，AST 18 U/l，ALT 19 U/l，LDH 150 U/l。子宮

昭和大学藤が丘病院産婦人科

*責任著者

〔受付：2023年2月3日，受理：2023年2月10日〕

頸部細胞診 NILM, 内膜細胞診は子宮の屈曲が強く施行できなかった. 造影骨盤 MRI 検査 (図 1) で, 子宮に腺筋症様病変を認め, かつ一部 T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で軽度高信号, 拡散強調画像で軽度高信号かつ ADC map で一部低信号を呈する約 8 cm 大の腺筋症とは別の約 8 cm 大の子宮腫瘍を認めた. 子宮筋腫と考えていた子宮腫瘍が MRI 拡散強調画像で軽度高信号かつ ADC map で一部低信号を認めたことから, 子宮平滑筋肉腫などの悪性腫瘍も否定できなかったため, 転移の有無を確認するために造影 CT 検査を施行した. CT 検査の結果, 多発肺動脈血栓および左下肢静脈血栓に加え, 12×25 mm 大の嚢胞状に腫大した右傍大動脈

リンパ節を認めた (図 2).

術前に肺動脈血栓と下肢静脈血栓に対して抗凝固療法と下大静脈フィルターを留置した. 子宮腫瘍 (悪性否定できず) および子宮腺筋症, 右傍大動脈リンパ節腫大の診断で, 開腹手術 (子宮全摘術+両側卵管切除+右傍大動脈リンパ節生検) を施行した. 卵巣やダグラス窩を含め, 骨盤内および腹腔内に子宮内膜症の病変を認めなかった. 子宮周囲に癒着を認めず, 両側卵巣は正常大であった. 肉眼的にも右傍大動脈リンパ節の腫大を認めたため摘出した.

術後病理診断では, ほとんどが子宮腺筋症で 6 cm 大と 5 cm 大の子宮筋腫を認め, 悪性所見を認めなかった. 摘出した右傍大動脈リンパ節に, 出血

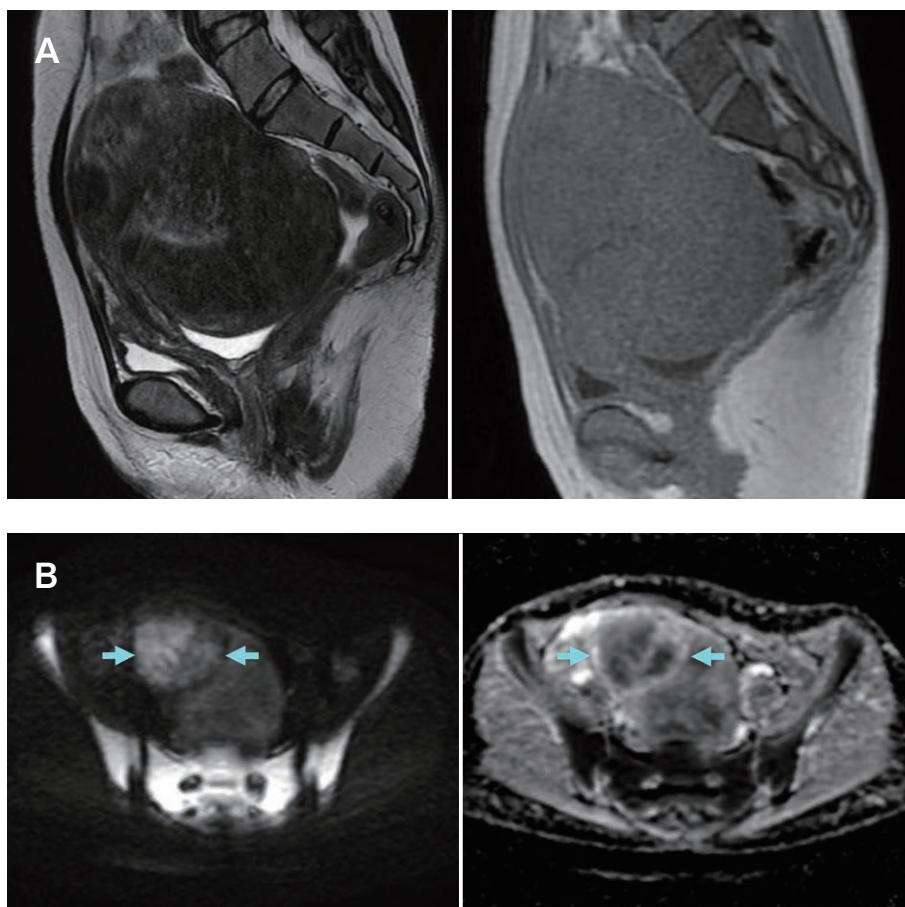


図 1 造影骨盤 MRI 検査

- A: T1 強調画像 (左): 一部に点状高信号を認め, 子宮腺筋症が考えられた.
子宮右前壁には 8.7 cm 大の腫瘤性病変を認め, 内部は低信号を示した.
T2 強調画像 (右): junctional zone から連続する低信号を認め, 子宮腺筋症が考えられた. 腫瘤性病変は軽度高信号を示した.
- B: 拡散強調画像: (左) 軽度高信号 (右) ADC map の一部低信号 (青矢印) を認め, 悪性の合併を完全には否定ができない.

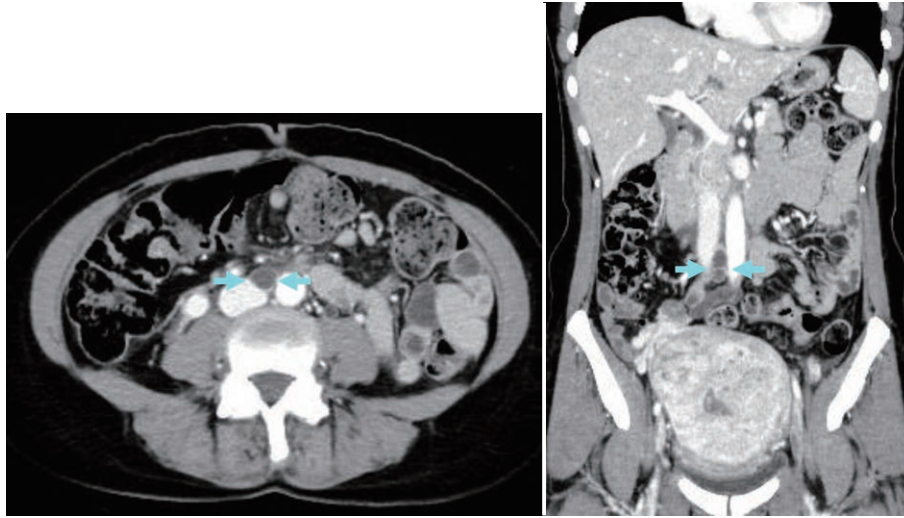


図 2 造影 CT 検査（水平断，冠状断）
腸骨動脈分岐直上では腹部大動脈・下大静脈間に 2 こぶ状の 12×25 mm ほどの嚢胞
あり転移性リンパ節腫大が考えられた（青矢印）。

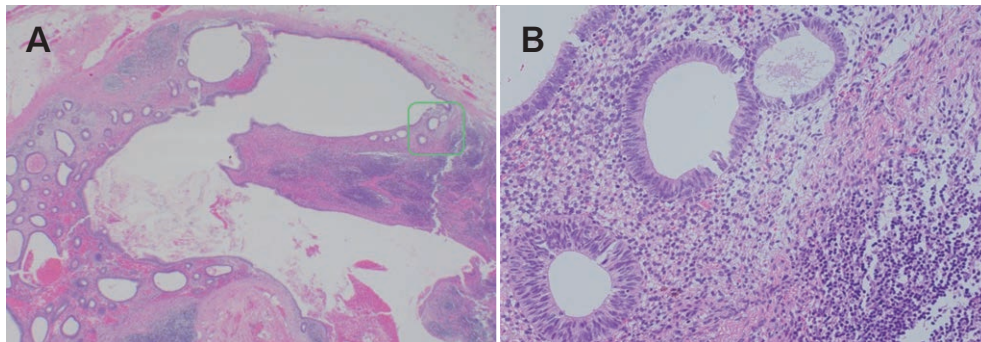


図 3 病理組織診断（HE 染色）（A：×4 B：×40）
傍大動脈リンパ節内に子宮内膜症を認めた。

や血腫を認めず子宮内膜と間質および組織球の集簇が確認され，傍大動脈リンパ節子宮内膜症と診断した（図 3）。

術後経過良好で 7 日目に退院した。術後療法は，再発予防のためジェノゲスト内服を選択した。術後 1 年目に再発の有無の評価のため単純 MRI 検査を施行した。右総腸骨静脈近傍と左外腸骨動脈近傍に，T1 強調画像で高信号かつ T2 強調画像でリンパ節に類似した信号の小結節を認め，リンパ節内膜症が疑われた。術後 2 年目の MRI 検査でも同部位に同じ所見を認めた。しかし，大きさの著変なく，CA125 8.1 U/ml と上昇を認めず，炎症による反応性の腫大の可能性も考えられたが，ジェノゲスト内

服を継続することとして慎重に外来で経過観察を行うこととした。

考 察

本症例では，骨盤内および腹腔内に子宮内膜症の所見を認めず，かつ骨盤内リンパ節腫大もなく，単独で傍大動脈リンパ節に子宮内膜症病変を認めた。嚢胞状に腫大したリンパ節病変を認める場合は，悪性疾患によるリンパ節転移の他に，リンパ節子宮内膜症を鑑別として考慮する必要がある。

子宮内膜症は全身の諸臓器に発症しうる疾患であり，生殖年齢女性の 10-15% に認められる⁴⁾。骨盤内臓器に発生することが多く，そのうち深部子宮内

膜症は腹膜表面から5 mm以上浸潤した病変と定義され、一般に直腸やS状結腸、直腸腔中隔、膀胱子宮窩にできやすい。骨盤内以外に骨盤外の腸管や皮膚、肺などの稀少部位にも発生し、稀少部位子宮内膜症²⁾とされている。稀少部位子宮内膜症は、その頻度からless common siteあるいはrare siteに分類される。less common siteは大腸、小腸、虫垂、子宮頸部、膣、卵管、皮膚、尿管、膀胱、大網、骨盤内リンパ節が含まれる。Rare siteは肺、胸膜、軟部組織、乳房、骨、上部腹膜、胃などが含まれる。

子宮内膜症のリンパ節病変としては骨盤内リンパ節が多いが、傍大動脈リンパ節の報告がわずかに限られる⁴⁻⁸⁾。その多くは悪性腫瘍の手術で摘出されたリンパ節に偶発的に子宮内膜症が発見される場合^{4,5)}である。悪性疾患以外で傍大動脈リンパ節に子宮内膜症を認めた報告はわずかで、多くは骨盤内リンパ節に子宮内膜症を認めた症例である⁴⁾。傍大動脈リンパ節に発症した子宮内膜症は、骨盤リンパ節に発症する子宮内膜症と同様のless common siteに相当すると考えられ、本症例のように骨盤内リンパ節に子宮内膜症を認めず、単独で傍大動脈リンパ節に子宮内膜症を認めた報告はこれまでに2例のみである^{4,9)}。

子宮内膜症の病態はよく知られているが、リンパ節転移の機序は不明である。既存の子宮内膜症の発生の仮説として、月経時に剥離した子宮内膜が月経血とともに腹腔内に逆流して腹膜に生着するとする子宮内膜着床説が広く受け入れられているが、この説だけで骨盤外の子宮内膜症を説明することは困難である¹⁾。

一方、Halbanの転移説では、子宮内膜細胞がリンパ管や血管を経由して骨盤外臓器に出現することが示されており、リンパ節子宮内膜症に骨盤内の深部子宮内膜症を伴うことが多いと報告^{3-5,10)}されている。また、子宮内膜症におけるリンパ管形成の可能性とリンパ管密度の両方が増加していること¹¹⁾から、子宮内膜症がリンパ節に転移することが推測される。本例は深部子宮内膜症を認めなかったが、びまん性子宮腺筋症を併発していたことから、その関連が示唆される。子宮腺筋症は正常内膜の基底層の間質細胞が何らかの原因によって剥離してリンパ管に取り込まれ、筋層内に入り、この細胞が子宮筋層内で集簇し一部に化生を生じて腺管が形成される

と、腺と間質を備えた子宮内膜組織となると考えられることから、子宮腺筋症は内膜のリンパ行性転移によって発生すると考えられる¹²⁾。子宮腺筋症と深部子宮内膜症が臨床において合併することも多いため、子宮腺筋症も深部子宮内膜症に類似する病態の可能性があると推測できる。最近ではLiらの報告⁹⁾でも、子宮腺筋症からリンパ節へ子宮内膜が転移する可能性が示唆されているが、子宮腺筋症単独からのリンパ節転移の報告は本症例を含め2例の報告のみである。

骨盤外の子宮内膜症は、骨盤内臓器から距離があるため診断はより困難であり、その84%は婦人科以外の症状で診断される¹⁾。特に、稀少部位子宮内膜症は、出血性嚢胞を形成することは珍しく、リンパ節に腫瘤を形成することで発見される¹³⁾。MRI検査でT2強調画像低信号と内部点状高信号が特徴的¹⁴⁾であるが、MRI拡散強調画像で高信号、MRIのADC mapで低信号、PET/CT検査で高集積となるため、転移性リンパ節と類似している。転移性リンパ節は内部の性状により多彩な像を示すことが知られるため、画像での鑑別は困難である。本症例は、嚢胞性病変を形成していたが、MRI検査で拡散強調画像の軽度高信号、ADC mapの軽度低信号を認めたこと、PET/CT検査で高集積を認めたことより、Liらの報告⁹⁾と同様に転移性リンパ節を完全に否定できなかった。本症例は、画像診断上嚢胞性であった点が特徴的であったが、リンパ節の子宮内膜症と悪性腫瘍のリンパ節転移を画像評価のみで鑑別することは困難であった。そのため原発巣の良悪性を含めた総合的な評価と、リンパ節の生検を含めた病理学的な精査が重要となる^{3,4,15)}。

稀少部位子宮内膜症の治療法として内科的療法と外科的療法がある。リンパ節子宮内膜症の治療に関しては稀少部位子宮内膜症診療ガイドラインにも記載はなく確立していない。本症例では子宮腺筋症以外には、傍大動脈リンパ節のみに病変を認めたため摘出した。術後は全身のリンパ節に再発する可能性を考慮して、追加治療としてジェノゲスト療法を選択した。現在のところ、明らかな再発や他臓器への転移を認めていないが、Liらの報告⁹⁾では閉経前後(E2 < 15 pg/ml, FSH 27.31 mIU/ml)においても、傍大動脈リンパ節に転移を認めた症例を報告していることから、中長期的に慎重にフォローする

必要がある。

骨盤外子宮内膜症は、骨盤内および腹腔内に子宮内膜症病変を認めず、骨盤内リンパ節腫大も認めないときでも傍大動脈リンパ節のみに発生し得る。嚢胞状に腫大したリンパ節病変を認めた場合、悪性疾患によるリンパ節転移のほかにリンパ節子宮内膜症を考慮する必要がある。

利益相反

本研究に関し開示すべき利益相反はない。

文 献

- Andres MP, Arcoverde FVL, Souza CCC, *et al.* Extrapelvic endometriosis: a systematic review. *J Minim Invasive Gynecol.* 2020;27:373-389.
- 「難治性稀少部位子宮内膜症の集学的治療のための分類・診断・治療ガイドライン作成」研究班編集. 稀少部位子宮内膜症診療ガイドライン. 初版. 東京: 診断と治療社; 2018.
- 貴志洋平. 子宮腺筋症の病態と MRI による画像診断. 日産婦会誌. 2020;72:583-590.
- 大久保奈緒, 小原久典, 山本さやか, ほか. 卵巣癌のリンパ節転移と鑑別を要した骨盤および傍大動脈リンパ節の子宮内膜症の一例. 関東連産婦会誌. 2017;54:441-446.
- Nixon KE, Kenneth Schoolmeester J, Bakkum-Gamez JN. Florid cystic endosalpingiosis with uterine preservation and successful assisted reproductive therapy. *Gynecology Oncology rep.* 2018;25:8-10.
- Beavis AL, Matsuo K, Grubbs BH, *et al.* Endometriosis in para-aortic lymph nodes during pregnancy: case report and review of literature. *Fertil Steril.* 2011;95:2429.e9-e13.
- Escobar PF. Lymphatic spread of endometriosis to para-aortic nodes. *J Minim Invasive Gynecol.* 2013;20:741.
- Christable E, Shivkumaran SM, Venkitaraman B, *et al.* Endometriosis of para-aortic node masquerading a malignancy: a rare occurrence. *BMJ Case Rep.* 2021;14:e240750.
- Li J, Liu Y, Du K, *et al.* Endometriosis in para-aortic lymph node resembling a malignancy: a case report and literature review. *BMC Women's Health.* 2022;22:101.
- Halban J. Hysteroadenosis metastatica (die lymphogene genese der sog. Adeno-fibromatosis heterotopica), Wien klin. Wchnsehr, 1924;37: 120-1206.
- Jerman LF, Hey-Cunningham AJ. The role of the lymphatic system in endometriosis: a comprehensive review of the literature. *Biol Reprod.* 2015;92:64.
- 西田正人. 子宮腺筋症はどうして起こるの?. 産科と婦人科. 2022;89:1082-1087.
- 清川貴子. 稀な部位に発生する子宮内膜症の病理. 日本エンドメトリオーシス会誌. 2012;33: 44-48.
- 坪山尚寛. 稀少部位子宮内膜症の画像診断. 日本エンドメトリオーシス会誌. 2016;37:60-65.
- 片渕秀隆. 特異部位の子宮内膜症の臓器特異性と組織発生. 日本エンドメトリオーシス会誌. 2010;31:102-109.

Para-aortic lymph node endometriosis: a case report

Karin Fujii*, Keiko Kawakami, Shingo Miyamoto,
Kazutaka Akira, Azumi Misawa, Sayumi Nakao,
Maiko Tauchi, Tomoya Miyamura, Makoto Nakabayashi,
Daisuke Maruyama, Ken Nakayama, Yasushi Sasaki
and Miki Morioka

Abstract — Lymph nodes are considered a rare site for endometriosis. Its involvement in endometriosis is frequent in the pelvic lymph nodes, where it is largely associated with deep pelvic endometriosis. Herein, we report a case of para-aortic lymph node endometriosis without deep-pelvic endometriosis. A 44-year-old patient was referred to our department because of anemia due to excessive menstruation. A magnetic resonance imaging scan revealed adenomyosis and a uterine myoma of 8.7 cm, with a mildly high signal on diffusion-weighted imaging and a partially low signal on the ADCmap. Therefore, malignancy could not be ruled out. Contrast-enhanced computerized tomography was performed for a systemic search, which revealed multiple pulmonary artery thrombi, left inferior vein thrombi, and a cystic right para-aortic lymph node with a size of 12 × 25 mm. Total abdominal hysterectomy, bilateral oophorectomy, and biopsy of the right para-aortic lymph node were performed after anticoagulation therapy and inferior vena cava filter placement. Intraoperative findings revealed no pelvic or abdominal cavity endometriotic lesions. Postoperative pathology revealed uterine myoma and adenomyosis with no malignant findings. The enlarged lymph nodes have endometriotic lesions. Endometriosis can develop in isolated lymph nodes, as endometrial cells can appear in extra-pelvic organs via lymphatic and blood vessels. This case was incidentally discovered when cystic enlargement of lymph node lesions is observed, but lymph node endometriosis should be considered in addition to lymph node metastasis due to malignant disease.

Key words: endometriosis, para-aortic lymph node

[Received February 3, 2023 : Accepted February 10, 2023]

Department of Obstetrics and Gynecology, Showa University Fujigaoka Hospital

*To whom corresponding should be addressed