

●症 例

臓側胸膜子宮内膜症による月経随伴性気胸の1例

芳賀 高浩^a 福岡みずき^a 森田 瑞生^a
長 晃平^a 片岡 秀之^b 栗原 正利^b

要旨：症例は30歳，女性．骨盤内子宮内膜症に対し，入院5年前から2年間，低用量ピルを内服していた．内服終了後，右自然気胸を発症した．以後，14回にわたり右気胸を繰り返しており，すべて安静で軽快していた．気胸の発症日は月経開始日もしくは前日であった．月経随伴性気胸を疑い，日産厚生会玉川病院紹介受診となった．局所麻酔下胸腔鏡検査を施行し，横隔膜に異常はみられなかった．胸腔鏡下に手術を施行し，右上葉の嚢胞を切除した．病理学的に臓側胸膜に子宮内膜間質が確認された．横隔膜に異常所見のない臓側胸膜子宮内膜症による月経随伴性気胸はまれであり，報告する．

キーワード：月経随伴性気胸，胸腔内子宮内膜症候群，子宮内膜症

Catamenial pneumothorax, Thoracic endometriosis syndrome, Endometriosis

緒 言

月経随伴性気胸は，月経開始24時間前から開始後72時間以内に発症する気胸と定義されている¹⁾．月経随伴性気胸の患者の多くは横隔膜に子宮内膜症が確認され，子宮から流入した空気が，横隔膜欠損孔を介して胸腔内に流入することが主な原因とされている¹⁾．我々は今回，横隔膜に異常所見のない臓側胸膜子宮内膜症による月経随伴性気胸を経験した．まれな病態であり，文献的考察を加えて報告する．

症 例

患者：30歳，女性．

主訴：右胸痛．

既往歴：骨盤内子宮内膜症に対し，入院5年前から3年前まで低用量ピルを内服していた．

家族歴：特記すべきことなし．

嗜好歴：喫煙歴，飲酒歴なし．

現病歴：入院3年前に右胸痛を自覚した．近医を受診し，右I度自然気胸と診断された．以後，14回にわたり右気胸を繰り返しており，すべて安静で軽快していた．

気胸の発症日は月経開始日もしくは前日であった．病歴から月経随伴性気胸を疑い，日産厚生会玉川病院を紹介され受診した．局所麻酔下胸腔鏡検査を施行し，横隔膜に異常はみられなかった．胸部CTにて明らかな嚢胞はみられなかったが，再発予防目的に手術を希望し，初診後1ヶ月で入院となった．

入院時現症：身長156cm，体重44kg，体温36.3℃，血圧106/74mmHg，脈拍65/min，SpO₂99% (room air)．眼球結膜に黄染なく，眼瞼結膜に貧血なし．表在リンパ節は触知せず．胸部聴診では異常呼吸音なし，心雑音なし．腹部に異常所見なし．神経学的に異常所見なし．下腿浮腫なし．

入院時検査所見：特に異常所見はみられなかった．

入院時胸部単純X線写真(図1)：右I度気胸がみられた．

胸部CT(図2)：右肺に軽度の気胸がみられた．明らかな嚢胞はみられず，その他肺野に異常所見はみられなかった．

入院後経過：入院後，黄体期に胸腔鏡下手術を施行した．胸腔内に癒着はみられず，横隔膜に異常はみられなかった．右上葉S3の辺縁に壁の薄い嚢胞を認め，繰り返す気胸の原因と判断した．胸腔内を詳細に観察したが，そのほかの部位には異常所見はみられなかった．右上葉の嚢胞を切除し，酸化セルロースメッシュにて胸膜を補強した．術後経過は良好であり，術後22ヶ月現在まで気胸の再発はみられていない．

病理組織学的所見(図3)：切除された肺標本は30×15mm大であった．嚢胞壁の近傍の胸膜に好酸性の細

連絡先：芳賀 高浩

〒158-0095 東京都世田谷区瀬田4-8-1

^a日産厚生会玉川病院呼吸器内科

^b同 気胸研究センター

(E-mail: tknhosp@yahoo.co.jp)

(Received 14 Feb 2013/Accepted 12 Apr 2013)

胞質を有し、小型類円形核を中に持つ細胞境界の明瞭な細胞が増殖しており、子宮内膜間質と診断した。子宮内膜腺はみられなかった。免疫染色では子宮内膜間質細胞は estrogen receptor, progesterone receptor, CD10 陽性であった。目立った炎症細胞浸潤はみられなかった。以上から、病理学的に臓側胸膜子宮内膜症と診断した。

考 察

月経随伴性気胸は女性の自然気胸の原因の一つである¹⁾。月経随伴性気胸の発症機序は以下の3つが提唱されている。①Maurer 説。月経時に子宮の頸部の粘液腺がはずれ、子宮から腹腔内へ空気が流入し、まず気腹と

なる。その後、先天的な横隔膜欠損、もしくは横隔膜子宮内膜症による横隔膜欠損を通じて胸腔内に空気が流入する²⁾。②Lillington 説。臓側胸膜子宮内膜が月経時に脱落し、臓側胸膜に欠損孔をつくり、気胸を引き起こす³⁾。③Rossi 説。月経時に血中で prostaglandin $F_{2\alpha}$ が増加し、肺血管、気管支を収縮させる。その結果、肺胞破裂が生じ、気胸を引き起こす⁴⁾。月経随伴性気胸の患者の多くは横隔膜に子宮内膜症が確認されることから Maurer 説が有力であるが、すべての症例を説明することはできない。Channabasavaiah らは78例の月経随伴性気胸の症例報告を検討し、71例(91%)に横隔膜病変がみられ、14例(18%)に臓側胸膜病変が、8例(10%)に壁側胸膜病変がみられたと報告している⁵⁾。Alifano らは、28例の月経随伴性気胸を検討し、22例(78.6%)に横隔膜病変がみられ、3例(10.7%)は横隔膜病変を伴わず臓側または壁側胸膜病変がみられ、3例(10.7%)は横隔膜病変を伴わず肺嚢胞がみられたと、報告している⁶⁾。横隔膜病変がみられない月経随伴性気胸では、Maurer

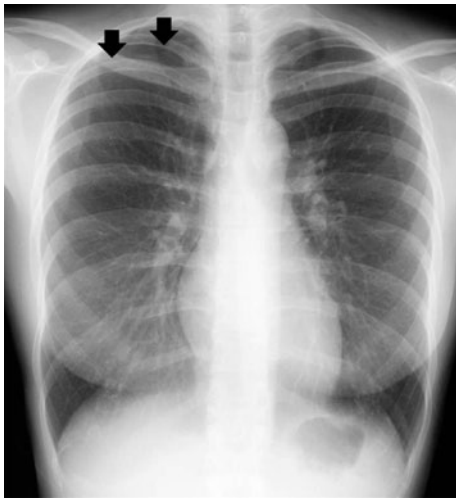


図1 入院時胸部単純X線写真。右気胸がみられた(矢印)。

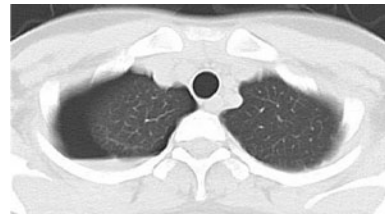


図2 入院時胸部CT。右気胸がみられた。明らかな嚢胞はみられず、その他肺野に異常所見はみられなかった。

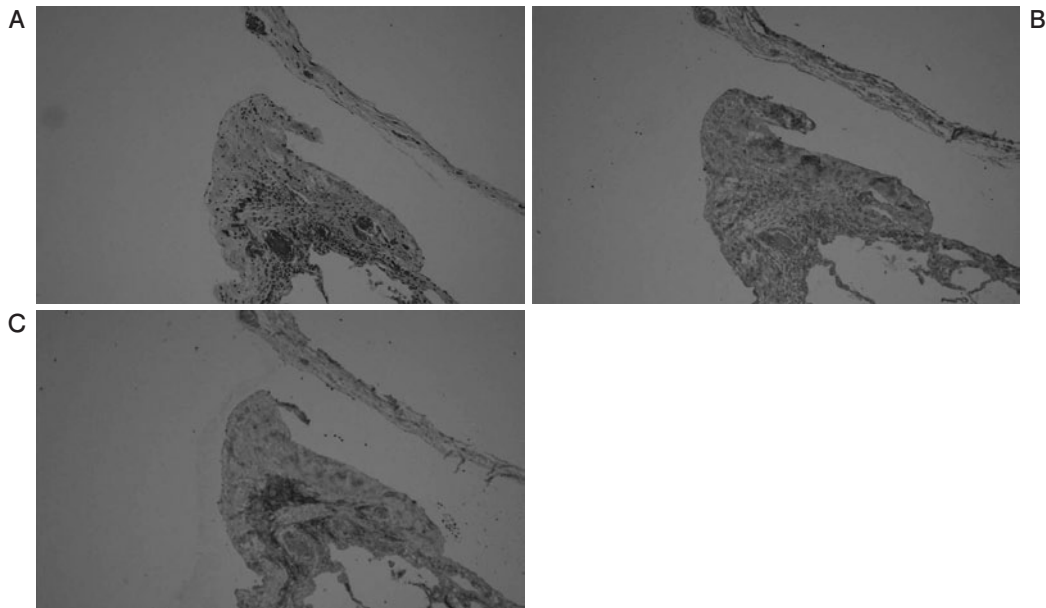


図3 嚢胞壁の近傍の胸膜に子宮内膜間質細胞がみられた(A)。免疫染色では子宮内膜間質細胞は estrogen receptor (B), progesterone receptor, CD10 (C) 陽性であった。

表1 臓側胸膜子宮内膜症による月経随伴性気胸の報告例

| 著者 | 年齢 | 骨盤内子宮内膜症 | 治療 | 予後 | 報告年 |
|-----------------------|----|----------|--------------|----------------|------|
| 鈴木 ⁸⁾ | 34 | あり | 手術 | 不明 | 1988 |
| 森脇 ⁹⁾ | 40 | 検索せず | 手術 ホルモン療法 | 術後34ヶ月で再発 | 1992 |
| 森脇 ⁹⁾ | 25 | 検索せず | 手術 | 不明 | 1992 |
| 森脇 ⁹⁾ | 33 | 検索せず | 手術 | 不明 | 1992 |
| 朝倉 ¹⁰⁾ | 31 | なし | 手術 | 術後10ヶ月の時点で再発なし | 1995 |
| Suzuki ¹¹⁾ | 41 | なし | 手術 | 術後24ヶ月の時点で再発なし | 1995 |
| 兼子 ¹²⁾ | 37 | あり | 手術 | 不明 | 2007 |
| 芳賀(本報告) | 30 | あり | 手術 | 術後22ヶ月の時点で再発なし | 2013 |

説以外の機序を考えるべきである。

本症例は横隔膜病変がみられず、気胸の原因は臓側胸膜子宮内膜の月経時の脱落による、臓側胸膜の欠損孔であると考えられた。臓側胸膜に子宮内膜が発生する機序として、以下の3つの説が考えられる⁷⁾。①腹腔内遊走説。子宮内膜組織が卵管から腹腔内へ逆流と遊走を繰り返して、横隔膜下に定着し、増殖して横隔膜子宮内膜症となる。横隔膜子宮内膜組織が胸腔内に播種する。②血行性転移説。子宮内膜組織が子宮および子宮付属器から静脈系に侵入して心臓を經由し、動脈系に入り各臓器に転移する。③中皮化生説。胸膜や腹膜の中皮細胞が化生して子宮内膜細胞になり、胸腔内で増殖する。本症例は横隔膜に病変を伴わないため、子宮内膜組織は、血行性に転移したか、中皮細胞が化生したと考えられる。

横隔膜病変を伴わない臓側胸膜子宮内膜症による月経随伴性気胸の報告は、我が国では本症例も含めて8例が報告されている^{8)~12)}(表1)。本病態の報告例が比較的小ない理由として、本病態自体がまれである可能性、子宮内膜組織は月経周期によって退縮するため、臓側胸膜子宮内膜症が術中に見逃されている可能性が考えられる。婦人科的な診察を受けた5例のうち、3例(60%)に骨盤内子宮内膜症が確認された。全8例が肺部分切除術により治療されており、1例のみ術後ホルモン療法が施行されていた。予後検索しえた4例中1例(25%)に術後再発がみられた⁹⁾。再発例は術後ホルモン療法を施行したが、術後34ヶ月で再発し、癒着療法を行った。

月経随伴性気胸の治療は一般的に病変部の切除が行われている¹⁾。術後再発率は30%程度と報告されている⁶⁾¹³⁾。Alifanoらは月経随伴性気胸の再発手術例を検討し、多くの症例で初回手術時の病変の見逃しが再発の原因であったと報告している¹⁴⁾。しかし、顕微鏡的な病変を術中に検知することは難しく、特に術中に胸腔内に異常所見が得られない場合、術後ホルモン療法や、癒着療法の併用が考慮される¹⁾。

まれな横隔膜病変を伴わない臓側胸膜子宮内膜症による月経随伴性気胸の1例を経験した。自然気胸の患者の

なかで、本疾患が見逃されている可能性があり、女性の自然気胸患者において嚢胞壁の免疫染色を含めた詳細な病理診断が必要であると考えられた。

謝辞：本例の診断につき、病理所見をご指導いただきました日産厚生会玉川病院病理科 三浦妙太先生、日本赤十字医療センター病理科 熊坂利夫先生に深謝いたします。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) Alifano M, et al. Thoracic endometriosis: current knowledge. *Ann Thorac Surg* 2006; 81: 761-9.
- 2) Maurer ER, et al. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. *JAMA* 1958; 168: 2013-4.
- 3) Lillington GA, et al. Catamenial pneumothorax. *JAMA* 1972; 219: 1328-32.
- 4) Rossi NP, et al. Recurrent catamenial pneumothorax. *Arch Surg* 1974; 109: 173-6.
- 5) Channabasavaiah AD, et al. Thoracic endometriosis: revisiting the association between clinical presentation and thoracic pathology based on thoracoscopic findings in 110 patients. *Medicine (Baltimore)* 2010; 89: 183-8.
- 6) Alifano M, et al. Catamenial and noncatamenial, endometriosis-related or nonendometriosis-related pneumothorax referred for surgery. *Am J Respir Crit Care Med* 2007; 176: 1048-53.
- 7) Joseph J, et al. Thoracic endometriosis syndrome: new observations from an analysis of 110 cases. *Am J Med* 1996; 100: 164-70.
- 8) 鈴木 勉. プレブの周囲に air leak の原因としての子宮内膜組織を認めた月経随伴性気胸. *綜合臨* 1988; 37: 197-99.
- 9) 森脇義弘, 他. 肺胸膜に子宮内膜症を認めた月経随伴性気胸. *日臨外医会誌* 1992; 53: 2118-24.

- 10) 朝倉庄志, 他. 肺痿周囲の胸膜に子宮内膜間質様組織を認めた月経随伴性気胸の一例. 日呼外会誌 1995; 9: 53-7.
- 11) Suzuki S, et al. Left-side catamenial pneumothorax with endometrial tissue on the visceral pleura. Jpn J Thorac Cardiovasc Surg 2006; 54: 225-7.
- 12) 兼子 耕, 他. 妊娠中に気胸が再発した胸膜子宮内
膜症の1例. 診断病理 2007; 24: 260-2.
- 13) Bagan P, et al. Catamenial pneumothorax: retrospective study of surgical treatment. Ann Thorac Surg 2003; 75: 378-81.
- 14) Alifano M, et al. Pneumothorax recurrence after surgery in women: clinicopathologic characteristics and management. Ann Thorac Surg 2011; 92: 322-6.

Abstract

A case of catamenial pneumothorax resulting from visceral pleural endometriosis

Takahiro Haga^a, Mizuki Fukuoka^a, Mizuo Morita^a, Kohei Cho^a,
Hideyuki Kataoka^b and Masatoshi Kurihara^b

^aDepartment of Respiratory Medicine, Nissan Tamagawa Hospital

^bPneumothorax Research Center, Nissan Tamagawa Hospital

The patient, a 30-year-old woman, took oral contraceptive pills from 5 years to 3 years prior to admission with pelvic endometriosis. After stopping this regular dosage, she developed right spontaneous pneumothorax. Thereafter a right pneumothorax was repeated 14 times, and they were cured by rest. The day of a pneumothorax onset was one of menstrual onset or the day before menstrual onset. She was referred to our hospital with suspicions of catamenial pneumothorax. A thoracoscopic examination on local anesthesia revealed no abnormal findings in the diaphragm. The operation was done by thoracoscopy, and bulla located in right superior lobe was resected. Microscopically, endometrial stromal cells were observed in visceral pleura. The report of catamenial pneumothorax caused by visceral pleural endometriosis without diaphragmatic abnormality is rare and is thought to be a valuable case.