

●症 例

子宮および両側付属器摘出術後に発症した月経随伴性気胸の1例

河野 拓^{a,*} 山本 宜男^a 中津留広成^a
 篠崎 聖兒^a 生田 安司^b

要旨：症例は32歳女性。27歳時に帝王切開で出血多量となり、子宮および両側付属器摘出術が行われた。6回の右気胸の発症歴があり、今回7回目の右気胸を発症したため入院となった。胸腔ドレナージを行ったが改善せず、外科で手術を行った。肺や横隔膜にblueberry spotの所見を認め、同部位から生検を行ったところ、病理組織学的に子宮内膜症と診断された。子宮および両側付属器摘出術を施行されたにもかかわらず、子宮内膜症に関連した月経随伴性気胸を発症した貴重な症例と考えられた。

キーワード：月経随伴性気胸，子宮摘出術，両側付属器摘出術，子宮内膜症

Catamenial pneumothorax, Hysterectomy, Bilateral oophorectomy, Endometriosis

緒 言

月経随伴性気胸は、月経周期に一致して気胸の再発を繰り返す疾患である¹⁾。その発症機序や治療については諸説あり、未だ確立したものはない。今回、子宮および両側付属器摘出術後にもかかわらず、病理組織学的に月経随伴性気胸と診断された稀少な症例を経験したので報告する。

症 例

患者：32歳，女性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：計6回の右気胸。胸腔鏡下右肺嚢胞切除術。帝王切開術。子宮および両側付属器摘出術。アレルギー性鼻炎。

内服歴：エストラジオール (estradiol) 貼付薬0.72mg/日，モンテルカスト (montelukast) 10mg/日，エメダスチンフマル酸塩 (emedastine difumarate) 2mg/日。

喫煙歴：なし。

現病歴：20XX-9年から20XX-6年までに右気胸を4回発症した。1, 2, 4回目の気胸は月経周期に一致してお

り月経随伴性気胸の可能性も考えられたが、確定診断には至らなかった。ホルモン療法も勧められたが、挙児希望があったため見送られていた。20XX-5年8月に帝王切開の際に多量出血があり、一時心停止に陥り胸骨圧迫を施行された。出血コントロール目的に子宮および両側付属器摘出術が行われた。術後7日目に右気胸を発症し、難治性であったため、胸腔鏡下右肺嚢胞切除術を施行された。術中所見ではblueberry spotを認めず、切除された標本では子宮内膜症の所見を認めず、月経随伴性気胸の診断には至らなかった。以降、子宮および両側付属器摘出後の治療として、エストラジオール補充療法を受けていた。20XX-2年12月に6回目の右気胸を発症したが、保存的加療で改善した。20XX年2月、右胸痛と呼吸困難を自覚したため、当科を受診した。胸部単純X線写真および胸部CTで右気胸を指摘され、精査加療目的に入院となった。

現症：体温36.4℃。SpO₂ 97% (室内気)。血圧101/57 mmHg。脈拍77回/分・整。呼吸数18回/分。呼吸音は右肺で減弱しているが、副雑音は認めない。

検査所見：白血球6,400/μL，赤血球418×10⁴/μL，ヘモグロビン12.7 g/dL。CA125 27.8 U/mL。肝腎機能に異常を認めない。

胸部単純X線写真 (Fig. 1)：右肺の虚脱を認める。

胸部CT (Fig. 2A, B)：右中葉，下葉の高度の虚脱を認める。上葉は一部癒着を認める。

臨床経過：入院後、右胸腔ドレナージを開始した。第5病日にクランプテストを行ったところ、再び右肺の虚脱を認めた。難治性気胸として、外科で手術を行う方針となった。胸腔鏡下に観察したところ、bullaやblebを認

連絡先：河野 拓

〒812-8582 福岡県福岡市東区馬出3-1-1*

^a 地域医療機能推進機構福岡ゆたか中央病院呼吸器内科

^b 地域医療機能推進機構九州病院外科

*現所属：九州大学病院呼吸器科

(E-mail: hiromu.kawano12@gmail.com)

(Received 9 Mar 2023/Accepted 30 May 2023)

めず、右上葉背側、横隔膜腱中心に blueberry spot を疑う所見を認めた (Fig. 3). エアリークテストでは明らかなリークを認めなかった. Blueberry spot の周囲には明らかな欠損孔や破綻を認めなかったが、気胸に関与している可能性を考え、周囲組織の切除と縫合を行った. 病理所見では、右上葉背側の切除組織では特異的所見を認めなかったが、右横隔膜の切除組織では、ヒアリン化、ヘモジデリンを含むマクロファージ、出血、子宮内膜腺および間質を伴う組織を認め、子宮内膜症および月経随伴性気胸と診断した (Fig. 4). 術後、肺の再虚脱はなく経過した. エストラジオール貼付剤の使用は中止とし、プロゲステロン (progesterone) を追加することでエストロゲンの影響を軽減させることを狙い、酢酸ノルエチステロン (norethindrone acetate) とエストラジオールの合剤の投与を開始した.

考 察

月経随伴性気胸は、月経周期に一致して再発を繰り返す女性特有の疾患で、30~40代の生殖期年齢の女性に好発する¹⁾²⁾. 右側に多いことが知られており、これは円靭



Fig. 1 Chest X-ray on admission showed right-sided pneumothorax.

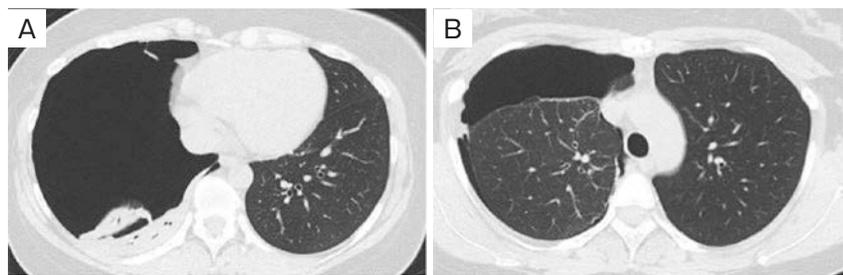


Fig. 2 Chest computed tomography (CT) findings. (A) Chest CT scans on admission showed collapse of the right lung, especially the middle and lower lobes. (B) Chest CT scan also showed a partial adhesion of the right upper lobe to the pleura.

帯や肝鎌状靭帯などの存在や腹水の流れによって、月経随伴性気胸の発症に関わるとされる子宮内膜組織が右横隔膜に停滞・生着しやすいためと考えられている³⁾. 治療としてゴナドトロピン放出ホルモンアゴニストによる偽閉経療法や外科手術が行われるが、手術を行った症例でも21%で再発したという報告もある⁴⁾.

伴場らの診断基準によると、月経開始3日前から5日後の間に発生し、2ヶ月に1回以上の間隔で3回以上繰り返すこと、あるいは発生頻度が少ない場合は横隔膜の欠損孔や胸腔内子宮内膜症が証明されること、そのいずれもみられない場合は bulla, bleb を認めないことによって月経随伴性気胸と診断される²⁾. 本患者は病理組織学的に胸腔内子宮内膜症が証明され、bulla, bleb を認めなかったことから、初めて月経随伴性気胸の診断となった. しかし、診断基準は満たさなかったものの、月経周期と一致した気胸を複数回発症しており、以前も月経随伴性気胸を繰り返していた可能性はある.

月経随伴性気胸の発症機序としては諸説あるが、横隔膜に生着した子宮内膜組織が欠損孔を形成し胸腔内に侵入し、臓側胸膜に生着した後に胸膜を脱落させ、気胸を発症させる、あるいは血行性に末梢気道に異所性子宮内膜組織が転移し、それに対する check valve 機構によって肺胞破裂が引き起こされるという肺胸膜子宮内膜症説⁵⁾、子宮や卵管から空気が腹腔内に流入し、横隔膜欠損孔を通じて胸腔内に入り気胸を起こすという空気腹腔由来説¹⁾、脱落子宮内膜中で増殖したプロスタグランジン F₂ が肺血管や気管支を攣縮させ肺胞組織を破壊させるというプロスタグランジン F₂ 説⁶⁾⁷⁾などが提唱されており、これらのうちのいずれか、あるいは複数の因子の関与によって発症に至るとされている⁸⁾. 今回の気胸においては、臓側胸膜の子宮内膜組織は証明されなかったものの、横隔膜に子宮内膜組織が証明されたことから、肺胸膜子宮内膜症説に合致すると考えたが、以前の気胸においては、他の発症機序によるものであった可能性はある.

また、今回の気胸は、子宮および両側付属器摘出後の

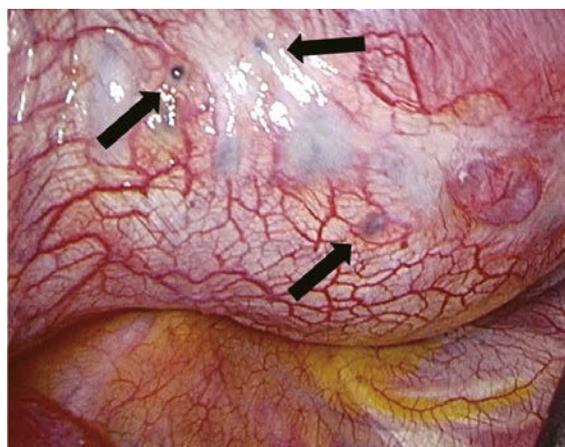


Fig. 3 Intraoperative findings: neither bullae nor blebs were observed, but a blueberry spot was found both in the diaphragm and a dorsal part of the right upper lobe (arrows).

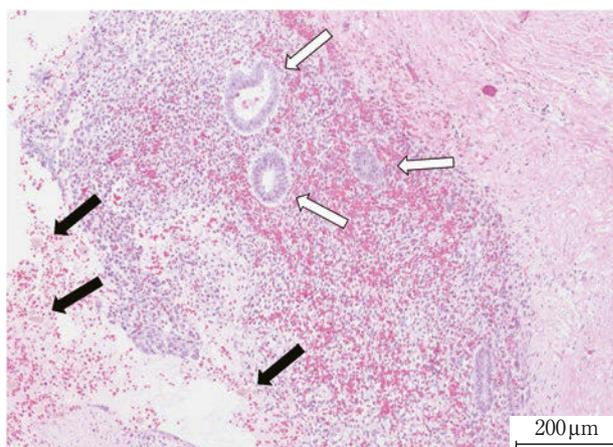


Fig. 4 Histopathological findings from diaphragm tissue showed mild chronic inflammation with hyalinization, hemosiderin-laden macrophages (black arrows), hemorrhage, and endometrial glands and stroma (white arrows), indicating endometriosis.

発症であり、子宮内膜組織が何に由来するのか、という疑問も残る。子宮内膜症の発症機序については未だ不明な点が多く、さまざまな要因が関わるといわれている⁹⁾。Sampsonは月経時に剥脱した子宮内膜組織が卵管を逆流し骨盤腔に至ることで子宮内膜症を発症するという子宮内膜播種移植説を提唱している¹⁰⁾。しかし、本症例においては、前述のとおり、子宮および両側付属器は摘出されており、この仮説では説明できない。一方でIwanoffやMeyerは体腔上皮化生説を提唱している¹¹⁾¹²⁾。これは骨盤腹膜などに存在するMüller管臓器などに分化しうる幼弱な体腔上皮細胞が何らかの刺激を受けることで子宮内膜細胞に化生するというものであり、本症例における子宮内膜症も説明しうる仮説である。子宮内膜細胞への分化に関わる刺激因子の一つとして、エストロゲンの存在が考えられる。エストロゲンは子宮内膜症の発症や増殖、機能維持に関与していることが知られている¹³⁾。エストロゲンを投与された前立腺癌の男性や更年期障害の閉経後女性において、稀少部位子宮内膜症を発症した症例が報告されており、この事実からは、外因性のエストロゲンによっても、子宮内膜症を発症しうることを示唆される¹⁴⁾¹⁵⁾。本症例では、月経随伴性気胸を繰り返していた患者が子宮および両側付属器摘出術によって、そのリスクが軽減されたものの、長期的なエストラジオール貼付剤の使用によって、月経随伴性気胸を再発した可能性が考えられた。

子宮および両側付属器摘出術後に月経随伴性気胸を発症した非常に稀少な1例を経験した。若年女性の再発性気胸では、たとえ子宮や付属器の摘出後でも月経随伴性気胸の可能性を考慮する必要がある。本疾患には未だ不明瞭な点が多く、さらなる症例の集積が必要と考える。

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

引用文献

- 1) Maurer ER, et al. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. *J Am Med Assoc* 1958; 168: 2013-4.
- 2) 伴場次郎, 他. 月経随伴性気胸の分類と診断基準. *日胸疾患会誌* 1983; 21: 1196-200.
- 3) Korom S, et al. Catamenial pneumothorax revisited: clinical approach and systematic review of the literature. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2004; 128: 502-8.
- 4) 谷村繁雄, 他. 月経随伴性気胸に対し手術は必要か?—自験および文献報告例の検討—. *日胸外会誌* 1997; 45 (suppl): 1445.
- 5) Lillington GA, et al. Catamenial pneumothorax. *JAMA* 1972; 219: 1328-32.
- 6) Rossi NP, et al. Recurrent catamenial pneumothorax. *Arch Surg* 1974; 109: 173-6.
- 7) Fonseca P. Catamenial pneumothorax: a multifactorial etiology. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1998; 116: 872-3.
- 8) 橘 啓盛, 他. びまん性に異所性子宮内膜を認めた月経随伴性気胸の1例. *日呼外会誌* 2006; 20: 790-4.
- 9) 杉並 洋. 子宮内膜症の発症とその機序. *産婦治療* 2008; 96: 234-40.
- 10) Sampson JA. Peritoneal endometriosis due to the menstrual dissemination of endometrial tissue into the peritoneal cavity. *Am J Obstet Gynecol* 1927; 14: 422-69.

- 11) Iwanoff NS. Drüsiges cystenhaltiges Uterusfibromyom complicirt durch Sarcom und Carcinom. (Adenofibromyoma cysticum sarcomatodes carcinomatosum). Monatsschrift für Geburtshilfe und Gynäkologie 1898; 7: 295-300 (in German).
- 12) Meyer R. Über den Stand der Frage der Adenomyositis, Adenomyome im allgemeinen und insbesondere über Adenomyositis seroepithelialis und Adenomyometritis sarcomatosa. Zentralbl Gynakol 1919; 36: 745-50 (in German).
- 13) Hastings JM, et al. Future directions in endometriosis research. Semin Reprod Med 2003; 21: 255-62.
- 14) Suginami H. A reappraisal of the coelomic metaplasia theory by reviewing endometriosis occurring in unusual sites and instances. Am J Obstet Gynecol 1991; 165: 214-8.
- 15) 樋口和女, 他. エストロゲン製剤使用中の閉経女性に発生した尿管子宮内膜症の1例. 日泌会誌 2009; 100 : 693-7.

Abstract

A case of catamenial pneumothorax after hysterectomy and bilateral oophorectomy

Hiromu Kawano^{a,*}, Norio Yamamoto^a, Kosei Nakatsuru^a,
Seiji Shinozaki^a and Yasushi Ikuta^b

^aDepartment of Respiratory Medicine, Japan Community
Health care Organization, Fukuoka Yutaka Chuou Hosipital

^bDepartment of Surgery, Japan Community Health care Organization, Kyushu Hosipital

* Present address: Department of Respiratory Medicine, Kyushu University Hospital

The patient, a 32-year-old woman, had previously undergone a hysterectomy and bilateral oophorectomy. She had had six previous episodes of right-sided pneumothorax, and this time was admitted to our hospital because of the seventh occurrence. Thoracic drainage was performed, but after no improvement, she underwent surgery. A thoroscopic observation revealed a blueberry spot both in the upper lobe of the right lung and in the diaphragm. On biopsy it was histopathologically diagnosed as endometriosis. This case is considered to be a rare case of catamenial pneumothorax related to endometriosis, despite the fact that the patient had undergone a hysterectomy and bilateral oophorectomy.