

A Case of Cervical Endometriosis with the Sudden Onset of Massive Genital Bleeding, Mimicking Cervical Malignancy

Chihiro KİYOSHIMA¹⁾, Miyako MAEHARA¹⁾, Tomohiro ITO¹⁾,
Yoko TAKAHASHI¹⁾, Taeko UEDA²⁾, Mikiko AOKI³⁾,
Kazuki NABESHIMA³⁾, Toshiyuki YOSHIKATO⁴⁾, Shingo MIYAMOTO¹⁾

¹⁾ Department of Obstetrics and Gynecology, Faculty of Medicine, Fukuoka University

²⁾ Department of Obstetrics and Gynecology, University of Occupational and Environmental Health

³⁾ Department of Pathology, Faculty of Medicine, Fukuoka University

⁴⁾ Center for Maternal, Fetal and Neonatal Medicine, Fukuoka University Hospital

Abstract: We herein report a case of cervical endometriosis with the sudden onset of massive genital bleeding in which the clinical signs resembled those of cervical malignancy, making the condition difficult to diagnose. A 46-year-old woman (gravida 3, para 3) was transferred to our department due to genital bleeding. On a speculum examination, a black ulcerative lesion measuring 2 cm in diameter with venous bleeding was observed on the uterine cervix at the 8 o'clock position. Transvaginal color-Doppler ultrasound showed flow signals on the posterior uterine cervix and Douglas pouch. The uncontrollable bleeding persisted, and pelvic arterial embolization was performed. A cervical biopsy demonstrated degenerated epithelial cells with inflamed granulation tissue and hemosiderin deposition. The bleeding continued after the biopsy. Since we were unable to rule out a diagnosis of cervical malignancy, semi-radical hysterectomy was performed. A pathological examination confirmed endometriosis with an endometriotic glandular epithelium and stroma without malignancy. The patient was successfully discharged on the 11th postoperative day.

Key words: Uterine cervix, Endometriosis

突然の大量性器出血で発症し、悪性腫瘍との鑑別に苦慮した 子宮頸部子宮内膜症の1例

清島 千尋¹⁾, 前原 都¹⁾, 伊東 智宏¹⁾,
高橋 庸子¹⁾, 植田多恵子²⁾, 青木光希子³⁾,
鍋島 一樹³⁾, 吉里 俊幸⁴⁾, 宮本 新吾⁴⁾

¹⁾ 福岡大学病院産婦人科

²⁾ 産業医科大学産婦人科学講座

³⁾ 福岡大学医学部病理学講座

⁴⁾ 福岡大学病院総合周産期母子医療センター

要旨: 子宮内膜症の発生部位は多彩で、子宮頸部は稀である。我々は、子宮頸部に内膜症を発症し、子宮頸部から突然多量の出血を認め、悪性腫瘍との診断に苦慮した1症例を経験したので報告する。症例は46歳、3経妊3経産である。多量の性器出血を認め、当科へ緊急搬送された。腔鏡診では子宮腔部後壁8時方向に

黒褐色で2 cm大の陥凹性病変を認め、同部位より静脈性出血を認めた。経腔超音波カラードプラ法では子宮頸部後壁からダグラス窩に局限する血流信号を認めた。入院後、出血が持続し、骨盤動脈塞栓術を施行した。病変部の子宮頸部組織検査では、変性を伴った上皮細胞と炎症性肉芽組織およびヘモジデリン沈着を認めた。悪性黒色腫を含めた悪性疾患を除外できないこと、妊孕性温存希望がないことから準広汎子宮全摘術を施行した。術後病理組織検査では、悪性所見はなく、子宮内膜様腺上皮と間質で構成された子宮内膜症性病変を認めた。術後経過は良好で、術後11日目に退院となった。

キーワード：子宮頸部，子宮内膜症

緒 言

子宮頸部子宮内膜症は、子宮内膜症全体の0.11-2.4%を占める稀な疾患である^[1-3]。子宮頸部子宮内膜症の多くは無症状であり、子宮摘出術後あるいは子宮頸部円錐切除後にたまたま病理学的に診断される場合や子宮頸部擦過細胞診での異常所見を契機に診断される場合がほとんどである^[3,4]。そのため、自覚症状としては、不正性器出血や性交後出血を認める症例は少なく^[3,4]、大量出血を契機に診断されるものは極めて稀である^[5,6]。

我々は、突然の多量性器出血を認め、悪性腫瘍との鑑別に苦慮した子宮頸部子宮内膜症の1例を経験したので報告する。

症 例

年齢：46歳。

既往歴、生活歴：特記すべきことはなかった。

家族歴：母は糖尿病，母方祖母は子宮頸癌に罹患。

妊娠分娩歴：経妊3回経産3回。すべて経腔分娩であり、頸管裂傷の既往はなかった。

現病歴：元来月経は順調で、月経痛はなかった。当科を初診する2年ほど前から月経不順を主訴に近産婦人科を定期的に受診していた。子宮頸部擦過細胞診では異常は指摘されなかった。月経開始9日目に突然多量の性器出血を認め、前医を受診した。精査加療目的で当科へ緊急搬送となった。

入院時所見：身長162 cm，体重48.8 kg。明らかな表在リンパ節腫大を認めなかった。腔鏡診では子宮腔部8時方向で、外子宮口から2 cmの部位に黒褐色で径2 cm大の陥凹性病変があり（図1）、同部位より静脈性出血を認めた。コルポスコープでは、病変部に異常所見はなかった。内診では子宮頸部は鳩卵大，弾性硬であった。経腔超音波断層法では、子宮筋層内に径1-2 cm大の低エコー輝度を有する多発性腫瘤を認め、筋層内筋腫と診断した。カラードプラ法で、子宮頸部後壁からダグラス窩にかけて局限する豊富な血流信号を認めた（図2）。血液検査所見では、Hb値は6.2 g/dlと著明な小球性低

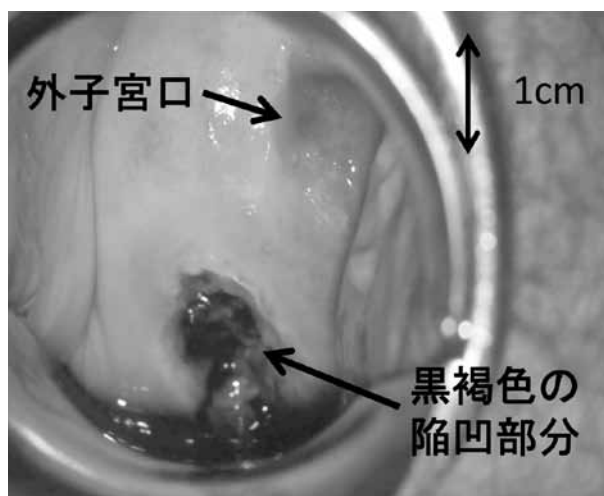


図1 子宮腔部肉眼所見
外子宮口より2 cm外側で8時方向に黒褐色の陥凹性病変および同部位から活動性の出血を認める。

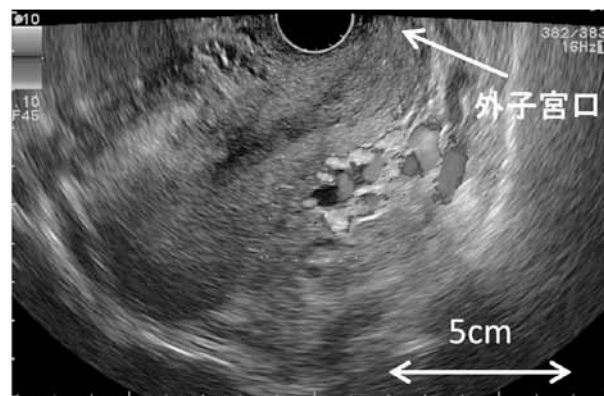


図2 経腔超音波カラードプラ法
子宮頸部後壁からダグラス窩にかけて豊富な血流信号を認める。

色素性貧血を認めた。腫瘍マーカーは、SCC 1.1 U/ml，CEA 0.7 ng/mlであった。

入院後の経過：貧血に対し、濃厚赤血球を4単位輸血施行し、ヨードホルムガーゼで子宮腔部を圧迫止血した。その後約600gの出血を認めたため、保存的な止血は困難と判断し、両側子宮動脈腔枝に対し、ゼラチンス

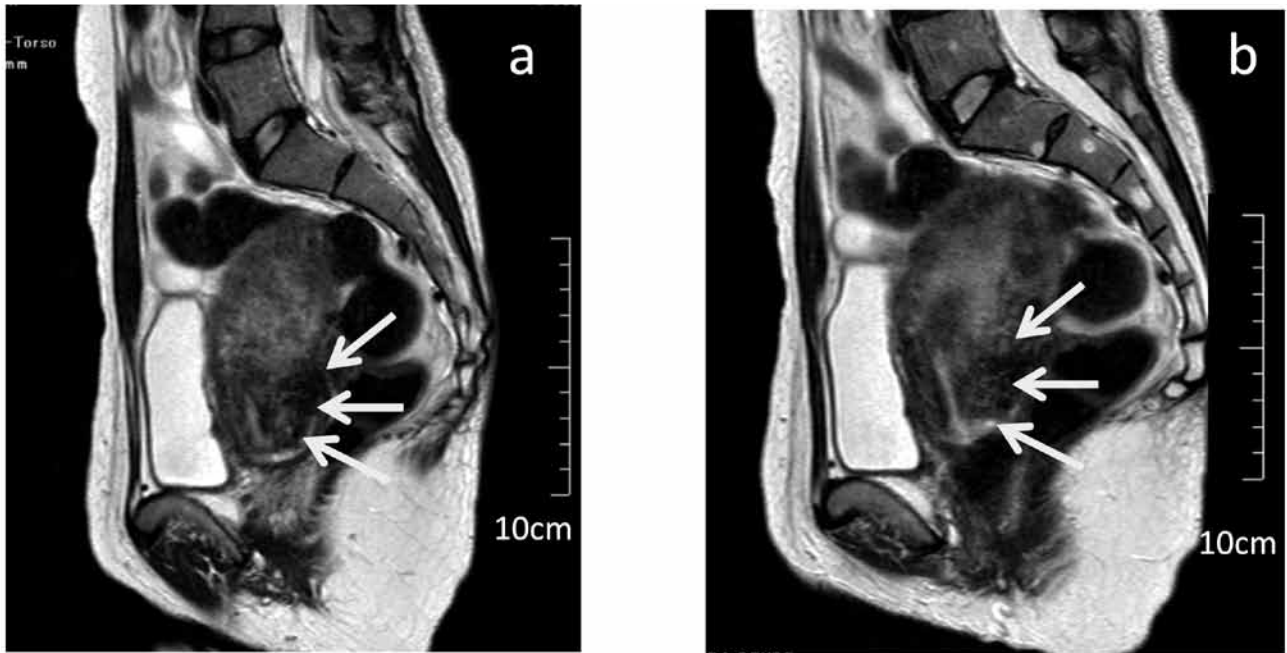


図3 骨盤部MRI検査 (a, T1強調画像造影 b, T2強調画像)

a, 子宮頸部後壁の腫瘍は辺縁のみの濃染を認め、内部は濃染不良である(矢印)。部分的に壊死性変化を来していることが示唆される。
b, 子宮体部筋層内に多数の筋腫を認める。低信号を示す腫瘍を子宮後壁に認める(矢印)。

ポンジによる骨盤動脈塞栓術を行った。塞栓術後、病変部位からの出血はなく、カラードプラ法でも子宮頸部後壁の血流信号は減弱した。骨盤部MRI検査では、T2強調画像で低信号を呈した子宮頸部後壁から突出する腫瘍像を認めた(図3)。子宮頸部擦過細胞診では核が腫大し、N/C比の増大した扁平上皮細胞を多数認め、核の大きさ、クロマチンともに揃っていたが核分裂像を伴っており(図4-A,B)、日医分類ではclass IIIであった。子宮頸部組織診では、核の腫大を伴った変性した上皮細胞が集簇していたが、明らかな異型は認めなかった(図4-C)。生検施行後、再度同部位からの出血が持続した。子宮頸部悪性疾患が否定できないこと、患者に妊孕性温存の希望がないことから、止血および外科的生検を目的に、入院後9日目に準広汎子宮全摘術を施行した。子宮は鷲卵大で子宮後壁と直腸は強固に癒着し、癒着剥離の際多量出血を認めた。両側卵巣卵管は正常外観で異常を認めなかった。術式は準広汎子宮全摘術を施行した。術中出血量は1,580gとなり、濃厚赤血球4単位を輸血した。

摘出子宮標本では、筋層内に径2cmの多発性の筋腫を認めた。子宮頸部8時方向の後腔円蓋部には黒色斑を認め、内部は弾性硬で壊死していた(図5)。病理組織検査では、後腔円蓋部の黒色点部分には出血およびヘモジデリンを貪食したマクロファージの集簇および、その部分を被覆するように内膜上皮細胞を認めた(図6-A,B)。免疫組織染色ではCD10陽性の内膜間質細胞を

認めた(図6-C)。直腸と癒着していた子宮後壁漿膜近くの筋層内には内膜上皮細胞および間質を認め、その周囲に炎症細胞が集簇している所見を認めた。最終診断は、子宮頸部内膜症、子宮腺筋症、多発性子宮筋腫であった。経過は良好であり、術後11日目に退院となった。

考 察

子宮頸部子宮内膜症は表在性と深在性の2つに分類される。表在性においては、病変は組織の表層に存在し、子宮内膜腺と間質で構成される。子宮頸部表層に病変がある場合、多くは無症状であるが、粘膜下に血腫、まれにポリープ様病変を形成する^[6-8]。また、子宮頸管腺表層に病変がある場合、しばしばglandular dysplasiaやadenocarcinoma in situなどと誤診されることがある^[2,9-12]。これは、表在性の子宮頸管間質は炎症や性周期に伴う変化に伴い、有糸分裂活性が盛んで、細胞異型を示すためである。一方、深在性においては、子宮頸部間質に子宮内膜巣を認め、ほとんどは無症状である。本症例においては、子宮頸部後壁に広範に子宮内膜症性病変を認め、深在性に分類される。病変の首座は子宮頸部後壁深部にあるが病変の進展とともに、子宮腔部に至り、それが破綻すれば、陥凹病変を形成および出血を来す。これまで子宮頸部子宮内膜症において本症例のように、カラードプラ法によって子宮頸部局所に血流信号の増強

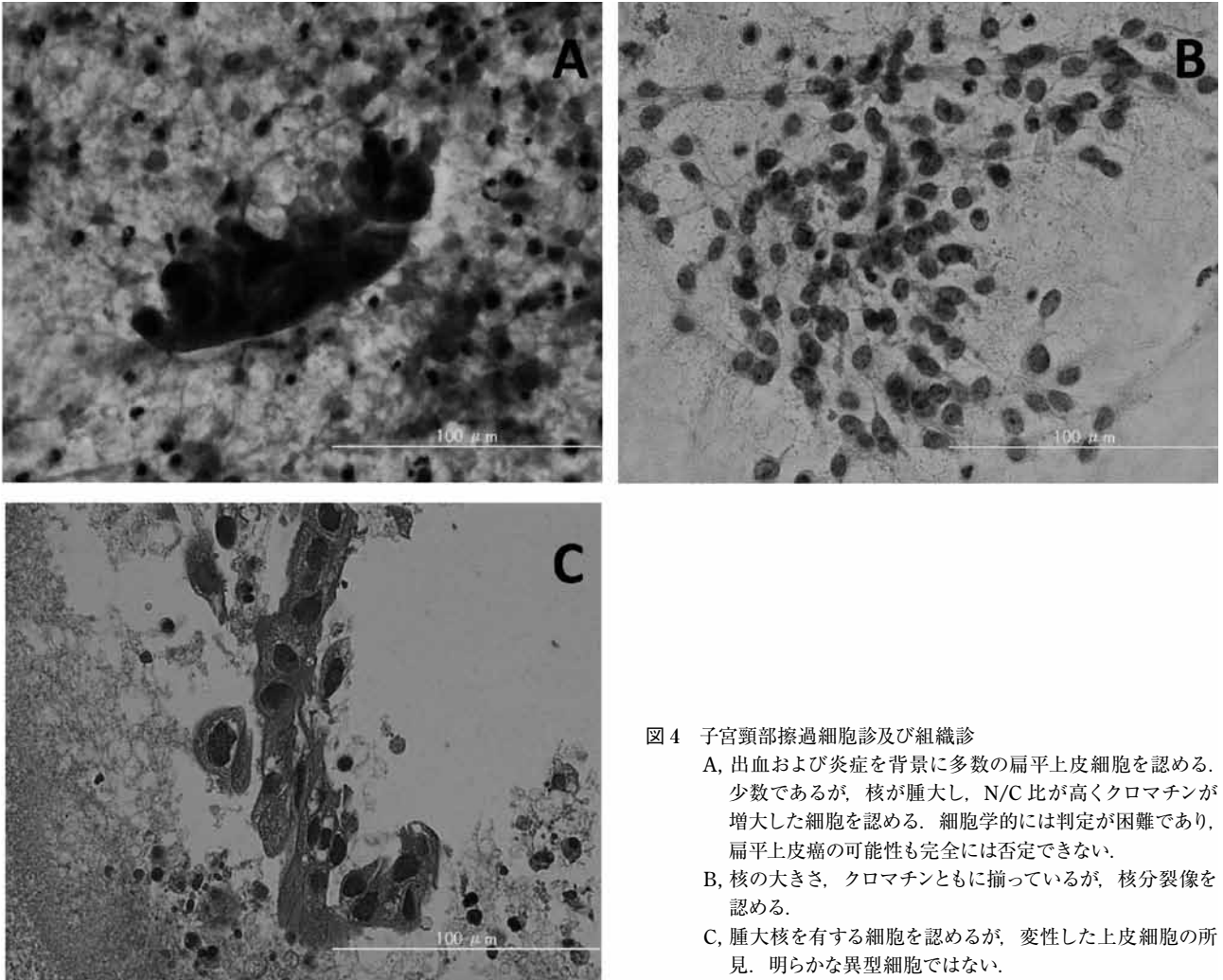


図4 子宮頸部擦過細胞診及び組織診

- A, 出血および炎症を背景に多数の扁平上皮細胞を認める。少数であるが、核が腫大し、N/C比が高くクロマチンが増大した細胞を認める。細胞学的には判定が困難であり、扁平上皮癌の可能性も完全には否定できない。
- B, 核の大きさ、クロマチンともに揃っているが、核分裂像を認める。
- C, 腫大核を有する細胞を認めるが、変性した上皮細胞の所見。明らかな異型細胞ではない。

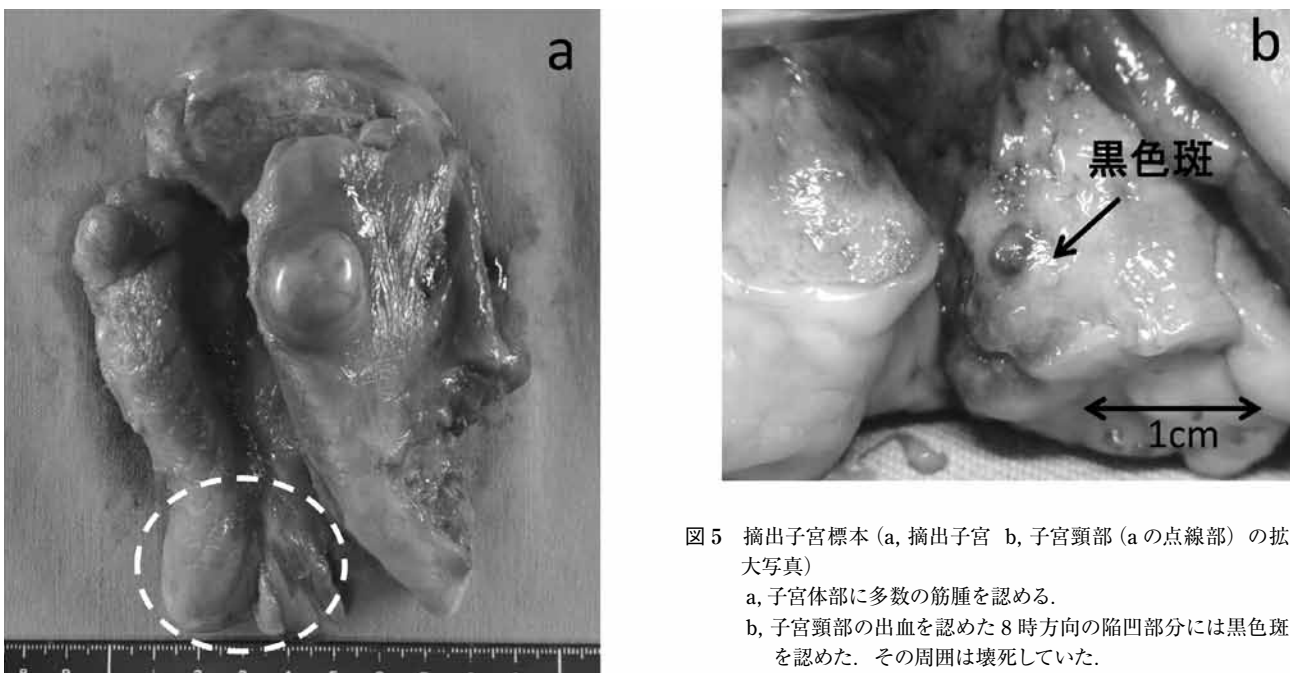


図5 摘出子宮標本 (a, 摘出子宮 b, 子宮頸部 (aの点線部) の拡大写真)

- a, 子宮体部に多数の筋腫を認める。
- b, 子宮頸部の出血を認めた8時方向の陥凹部分には黒色斑を認めた。その周囲は壊死していた。

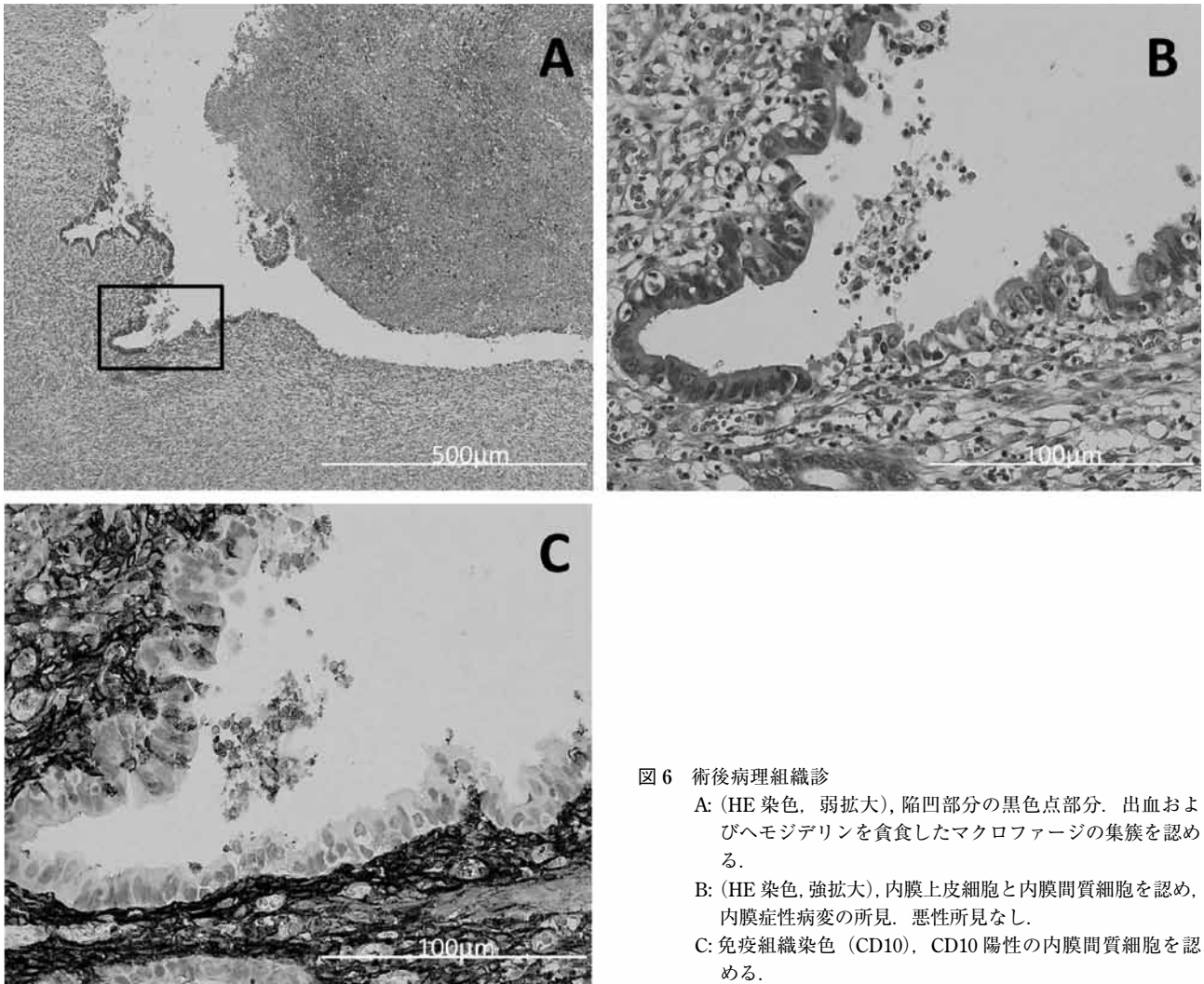


図6 術後病理組織診

- A: (HE染色, 弱拡大), 陥凹部分の黒色点部分, 出血およびヘモジデリンを貪食したマクロファージの集簇を認める。
- B: (HE染色, 強拡大), 内膜上皮細胞と内膜間質細胞を認め, 内膜症性病変の所見, 悪性所見なし。
- C: 免疫組織染色 (CD10), CD10陽性の内膜間質細胞を認める。

を示した症例の報告はない。しかし子宮腔部からの大量出血に対し骨盤動脈塞栓術を施行した報告によると、出血部位の近傍にらせん状の異型な血管の描出が観察された症例がある^[13]。このことから、子宮頸部後壁における豊富な血流は、子宮内膜の増殖に伴う新生血管に起因するものと考えられ、本症を診断する上で特徴的な所見のひとつといえる。

本症例では、月経時における局所の疼痛はなく、突然の性器出血で発症した。局所所見として、1) 子宮腔部後唇の黒色調の陥凹性病変と同部位からの活動性出血、2) 超音波カラードプラ法にて子宮頸部後壁に限局する豊富な血流信号、3) 擦過細胞診にて細胞異型の存在を認めたことから、子宮頸部悪性腫瘍を強く疑った。病変が黒色調であったことから、我々はまず悪性黒色腫を疑った。悪性黒色腫では陥凹性病変を伴うことはなく、局所の血流増加は認めないことから^[14]、後方視的にみると、本症例の所見は悪性黒色腫の特徴とは合致していなかった。扁平上皮癌は、頸部に認める最も頻度の高い悪

性腫瘍であり、病変は扁平上皮円柱上皮移行部 (SCJ) に発生する。しかしながら、本症例では明らかに SCJ とは離れていることから否定的であった。その他、子宮頸部腺癌も、潰瘍性病変を形成すること、血流が豊富であること^[15]を考えると鑑別すべき疾患のひとつであった。子宮頸部絨毛癌も極めて稀な疾患であるが病変部位が血流豊富であることが報告されている^[16]。しかし、絨毛癌では潰瘍性病変を伴うことはない。

本症例では、細胞診あるいは組織診で明らかな悪性所見は得られず、後方視的には確定診断を目的とした子宮頸部の広範囲な生検ないし子宮頸部円錐切除術を選択すべきであった。事実、本症の診断に際して針生検が有用であるといった報告^[1]や広い範囲の切除が有用であったという報告がある^[6]。本症例では、入院当初認められた子宮頸部後壁の豊富な血流は、動脈塞栓術施行後は消失したが、生検術を施行した際に再度出血を認めた。患者に妊孕性温存の希望はなく、止血目的を含めた一期的な診断的治療を選択した。妊孕性温存の希望がある場合は、

待機的な治療が可能であればホルモン療法が第一に選択される。

卵巣、腹膜、直腸腔中隔に出現する子宮内膜症は、各々発生機序が異なり、卵巣子宮内膜症は皮質へ陥入した体腔上皮化生（体腔上皮化生説）、腹膜では子宮内膜症の移植（子宮内膜組織移植説）、直腸腔中隔ではミュー管遺残化生（胎生組織遺残説）が原因だといった報告がある^[17]。子宮頸部子宮内膜症の発症には、頸管裂傷、子宮内容除去術等の子宮頸管操作との関連が指摘されている^[18]。しかしながら、本症例では、そのような既往はなかった。子宮頸部子宮内膜症は未妊婦にも発生すること、好発部位は後陰門蓋部であり^[19,20]、頸管裂傷の好発部位の3時、9時方向ではないことから、頸管操作後や分娩時頸管裂傷後の子宮内膜組織移植説単独では説明できない。本症例では、開腹所見として骨盤内に明らかな子宮内膜症病変を認めないこと、病変の首座が子宮頸部に局限していること、子宮後壁と直腸とが強固に癒着しておりその癒着剥離部位に内膜上皮細胞を認めることから、本症例における子宮内膜症の発症機序は直腸腔中隔におけるミュー管遺残化生が原因と考えた。

今回我々は止血不能な多量の出血を来し、悪性腫瘍との鑑別が困難であった子宮頸部子宮内膜症の1例を経験した。子宮頸部後唇から後陰門蓋部に黒色調病変あるいは陥凹病変を認め、同部位より出血を伴い、子宮頸部に豊富な血流信号を認める場合は、悪性疾患の他に子宮頸部子宮内膜症を念頭に置いて精査および治療を行う必要がある。

謝 辞

本論文を作成するにあたり、福岡大学病院産婦人科の近藤晴彦先生から、貴重なコメントをいただきました。ここに感謝の意を表します。

参 考 文 献

1. Veiga-Ferreira MM, Leiman G, Dunbar F, Margolius KA: Cervical endometriosis: facilitated diagnosis by fine needle aspiration cytology testing. *Am J Obstet Gynecol* 157: 849-56, 1987.
2. Baker PM, Clement PB, Bell DA, Yong RH: Superficial endometriosis of the uterine cervix: A report of 20 cases of a process that may be confused with endocervical glandular dysplasia or adenocarcinoma in situ. *Int J Gynecol Pathol* 18: 198-205, 1999.
3. Wang S, Li XC, Lang JH: Cervical endometriosis: clinical character and management experience in a 27-year span. *Am J Obstet Gynecol* 205: 452, e1-5, 2011.
4. Wong FW, Lim CED, Karia S, Santos L: Cervical endometriosis: Case series and review of literature. *J Obstet Gynecol Res* 36: 916-9, 2010.
5. Yokota N, Yoshida H, Sakakibara H, Inayama Y, Hirahara F: A severe vaginal hemorrhage caused by cervical endometriosis. *Am J Obstet Gynecol* 199: e12-3, 2008.
6. Iwase A, Goto M, Kurotsuchi S, Harata T, Kaseki S, Kikkawa F: Successful management of a massive hemorrhage due to rupture of cystic cervical endometriosis by a loop electrosurgical excision procedure. *Fertil Steril* 89: 991, e13-5, 2008.
7. Kwek JW, H'ng MWC, Chew SH, Tay EH: Florid polypoid endometriosis of the cervix with left ureteric obstruction: a mimic of cervical malignancy. *Ultrasound Obstet Gynecol* 36: 252-4, 2010.
8. 奥平さやか, 米山剛一, 武内 務, 峯 克也, 竹下俊行, 荒木 勤: 後陰門蓋から発生した子宮内膜症ポリープ。日産婦東京会誌 47: 501-5, 1998.
9. Mulvany NJ, Surtees V: Cervical/vaginal endometriosis with atypia: a cytohistopathologic study. *Diagn Cytopathol* 21: 188-93, 1999.
10. Lundeen, SJ, Horwitz, CA, Larson, CJ: Abnormal cervicovaginal due to endometriosis: A continuing problem. *Diagn Cytopathol* 26: 35-40, 2002.
11. Szyfelbein WM, Baker PM, Bell DA: Superficial endometriosis of the cervix: A source of abnormal glandular cells on cervicovaginal smear. *Diagn Cytopathol* 30: 88-91, 2003.
12. Lundeen SJ, Horwitz CA, Larson CJ, Stanley MW: Abnormal cervicovaginal smears due to endometriosis. *Diagn Cytopathol* 26: 35-40, 2002.
13. 古賀千悠, 井上知子, 庄司恵子, 佐久川直子, 山口俊一, 高本真弥, 山口 隆, 東梅久子, 横尾郁子, 北川浩明: 大量出血に対して子宮動脈塞栓術が有効であった頸管腺型腺筋症の1例。関東産婦誌 48: 499-502, 2011.
14. Cantuaria G, Angioli R, Nahmias J: Primary malignant melanoma of the uterine cervix: Case report and review of the literature: a case report. *Gynecol Oncol* 75: 170-4, 1999.
15. Epstein E, Dilegge A, Masback A, Lindqvist PG, Kannisto P, Testa AC: Sonographic characteristics of squamous cell cancer and adenocarcinoma of the uterine cervix. *Ultrasound Obstet Gynecol* 36: 512-6, 2010.
16. Yahata T, Kodama S, Kase H, Sekizuka N, Kurabayashi T, Aoki Y, Tanaka K: Primary choriocarcinoma of

- uterine cervix: clinical, MRI, and color Doppler ultrasonographic study. *Gynecol Oncol* 64: 274-8, 1997.
17. Nisolle M, Donnez J: Peritoneal endometriosis, ovarian endometriosis, and adenomyotic nodules of the rectovaginal septum are three different entities. *Fertil Steril* 68: 585-96. 1997.
18. Williams GA: Endometriosis of the cervix uteri - A common disease. *Am J Obstet Gynecol* 80: 734-41, 1960.
19. 久保裕子, 中村 学, 斎藤麻紀, 宮本純孝, 富田初男, 安藤昭彦: 子宮筋層内に発生した異所性子宮内膜症の2例. *日産婦関東連会報* 43: 365-71, 2006.
20. 高橋伸卓, 前田 真, 村上浩雄, 武隈宗孝, 松井浩之, 芹沢麻里子, 山下美和, 岡田善親: 子宮頸部に発生した異所性子宮内膜症の1例. *日本産婦人科学会雑誌* 54: 1641-4, 2002.
(平成 25. 9. 24 受付, 平成 26. 1. 20 受理)