

尿閉を来たした女性傍尿道平滑筋腫の1例

前田 航規, 和田 晃典, 影山 進
瀧本 啓太, 成田 充弘, 河内 明宏
滋賀医科大学附属病院泌尿器科

A FEMALE PARAURETHRAL LEIOMYOMA CAUSING
URINARY RETENTION: A CASE REPORT

Koki MAEDA, Akinori WADA, Susumu KAGEYAMA,
Keita TAKIMOTO, Mitsuhiro NARITA and Akihiro KAWAUCHI
The Department of Urology, Shiga University of Medical Science

Leiomyoma is a benign smooth muscle tumor which is rarely found in the paraurethral region. We report a case of paraurethral leiomyoma in a 44-year-old female who visited a clinic complaining of urinary retention. Magnetic resonance imaging revealed a 9 cm mass adjacent to the urethra. She was referred to our department. Transvaginal needle biopsy was performed and the histopathological diagnosis was leiomyoma. The mass was completely excised transperitoneally and transvaginally. The resected specimen was 8×7×4.5 cm in size and 194 g in weight. Histopathological diagnosis was leiomyoma and the tumor cells demonstrated immunoreactivity for estrogen receptors and progesterone receptors. Her postoperative course was uneventful and she gained normal voiding function. In a follow-up after 3 months, there was no evidence of recurrence. We discuss the clinical and pathological features of the paraurethral leiomyoma.

(Hinyokika Kiyo 61 : 455-458, 2015)

Key words : Paraurethral tumor, Paraurethral leiomyoma, Urinary retention

緒 言

女性の尿道およびその周囲に発生する非上皮性良性腫瘍は比較的稀な疾患とされている。今回われわれは尿閉を来たした女性傍尿道平滑筋腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 44歳, 女性
主 訴 : 尿閉
家族歴 : 母が子宮筋腫, 従姉が子宮頸癌
既往歴 : 子宮筋腫, 高血圧
妊娠出産歴 : 3経妊2経産
現病歴 : 2014年4月頃より頻尿, 尿勢低下を自覚していた。2014年10月に尿閉で近医を受診。導尿で1,500 mlの尿流出を認め, 膀胱留置カテーテルが挿入された。第1子出産時に子宮筋腫を指摘されており, 子宮筋腫による尿閉が疑われたため婦人科を受診。経膈エコーで膀胱左前方に腫瘍を認めた。CT, MRIで骨盤内腫瘍を認めたため同月, 精査加療目的に当科紹介となった。

入院時現症 : 外陰部に明らかな異常はなく, 内診で尿道左側に表面平滑で境界明瞭な弾性の腫瘤を触知した。

検査所見 : 血液生化学検査に異常所見は認めず, SCC, CA125, CA19-9, CEAなどの腫瘍マーカーは正常であった。子宮頸部細胞診は陰性であった。

画像所見 : 骨盤部MRI検査では, 尿道および膀胱に接する9 cm大の腫瘍を認め, 膀胱留置カテーテルを右前方に圧排していた。T1強調像では筋肉と等信号, T2強調像では筋肉より高信号を呈していた (Fig. 1)。画像診断では平滑筋由来の腫瘍が疑われ, 平滑筋肉腫など, 悪性腫瘍を除外する目的で腫瘍針生検および膀胱鏡検査を行った。

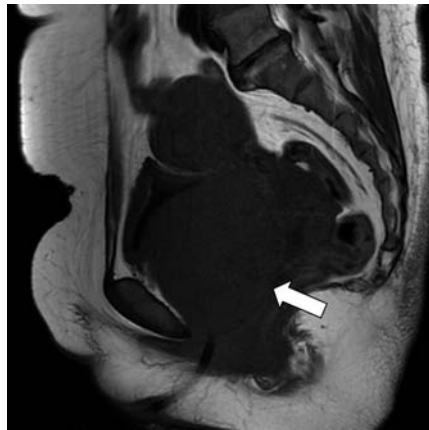
検査所見 : 尿道粘膜に明らかな異常所見は認めなかった。膀胱三角部から左側壁にかけて粘膜下腫瘍を疑う隆起を認め, 左尿管口を内側へ圧排していた。経膈エコーガイド下に腫瘍の針生検を行った。

病理組織学的所見 : 核異型に乏しく好酸性細胞質を有する紡錘形細胞が束を形成し, 増殖していた。一部で変性を示すが分裂像や壊死像は認めなかった。免疫染色ではdesmin, SMAが陽性であり, spindle cell tumor in the pelvisとの診断。Ki-67 labeling index 1~2%程度と悪性所見は認めなかった (Fig. 2)。

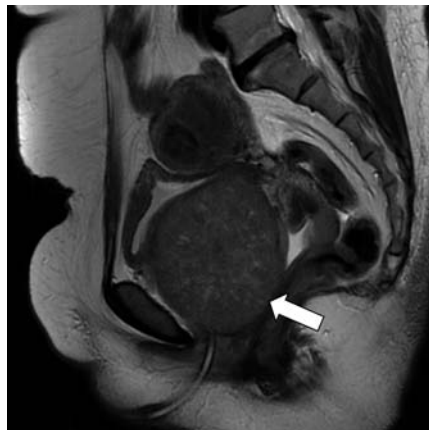
悪性所見を認めず単純腫瘍摘除で良いと判断した。腫瘍径が9 cmと大きいため, 経腹的および経膈的アプローチで腫瘍を摘除することとした。骨盤内腫瘍摘除および子宮筋腫に対する単純子宮全摘除術を行っ



A



B



C

Fig. 1. MRI shows a paraurethral mass (arrow) that compressed the bladder to the right side. A balloon catheter was indwelled into the bladder. (A) coronal, T2WI. (B) sagittal, T1WI. (C) sagittal, T2WI.

た。

手術所見：下腹部正中切開で開腹し，レチウス腔を展開して腫瘍を確認した。腫瘍と膀胱，子宮，尿管との連続性は認めなかった。腫瘍被膜は内骨盤筋膜と癒着しており剥離に難渋した。経膈操作を追加することで，腫瘍被膜の層を同定することができ，経膈的に腫瘍被膜直上で剥離を進めた。腫瘍の内側は尿道左側と

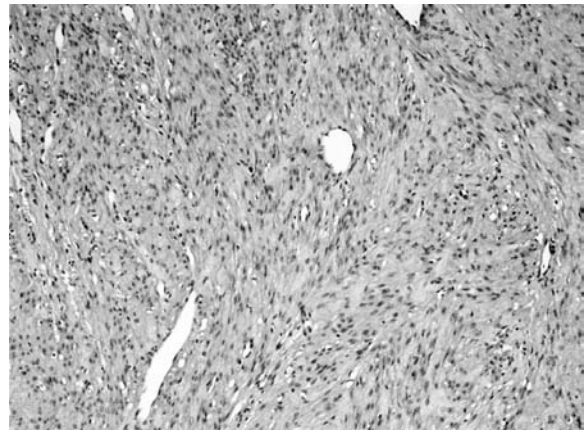


Fig. 2. Microscopically, the tumor was composed of spindle cells (HE staining, $\times 200$).

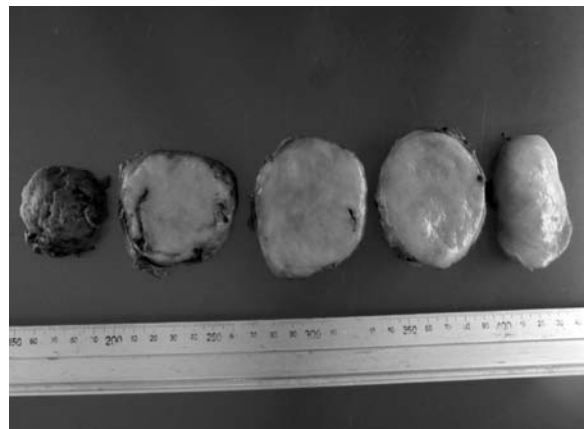


Fig. 3. Macroscopic photography: tumor was well-circumscribed $8 \times 7 \times 4.5$ cm in size and 194 g in weight. The cut surface of the tumor was homogeneously white.

癒着しており，尿道を損傷しないように腫瘍を一塊にして摘除した。腫瘍摘除後に子宮摘除を追加し，手術終了した。

摘出標本：腫瘍サイズは $8 \times 7 \times 4.5$ cm，重量は194 g，断面は均一な白色で充実性の腫瘍であった（Fig. 3）。

病理組織学的所見：生検標本と同様に紡錘形細胞が増殖し，estrogen receptor (ER) および progesterone receptor (PR) 陽性であった。以上により傍尿道平滑筋腫と診断した。

術後経過：術後4日目に膀胱留置カテーテルを抜去し，術後12日目に退院した。尿流測定では最大尿流率28.4 m/s，1回排尿量329 mlであり，排尿後のエコーでは残尿を認めなかった。術後3カ月経過した現在，再発を認めていない。

考 察

女性の尿道周囲に発生する非上皮性腫瘍は比較的稀とされており，解剖学的に尿道，膈と密接であるため

発生部位を明確にすることは困難とされている。発生起源として Muller 管や Wolf 管などの遺残, もしくは血管平滑筋由来と推察する報告があるが決定的なことはまだ不明である¹⁾。傍尿道腫瘍, 尿道腫瘍, 膣壁腫瘍など様々な名称が用いられていたが1972年の武本らの報告以降, 泌尿器科領域では傍尿道腫瘍という名称が一般的となっている²⁾。山田らが集計した本邦における女子傍尿道非上皮性腫瘍111例の報告では平滑筋腫が64%と最も多く, 次いで線維筋腫13%, 線維腫10%, 血管腫7%と続く³⁾。

傍尿道平滑筋腫はわれわれが調べた限り, 本邦で142例の報告がある。30, 40代の性成熟期の女性(平均39歳, 17~79歳)に多く発生し, 免疫染色で ER 陽性であることから女性ホルモンとの関連が考えられるが⁴⁾, 閉経後の女性や男性での報告も認めておりその関連は明らかではない⁵⁾。消化管の平滑筋腫では ER は陰性との報告があり, 泌尿生殖器系の平滑筋腫との発生起源の違いが示唆される⁶⁾。

主訴は無痛性腫瘍触知が最も多く, その他に排尿症状や外陰部出血などを認めることが多い (Table 1)。排尿障害を来した症例について発生部位, 標本重量で検討を行った。排尿障害は143例中20例で認め, 内尿道口に発生した7例ではすべての症例で排尿障害を

認めた。排尿障害を来した20例のうち尿閉は7例に認め, その詳細について検討した (Table 2)。自験例を含む4症例で腫瘍は内尿道口に及んでいた。明確な記載のあったその他2例では腫瘍による外尿道口の閉塞で尿閉を来した。以上より, 腫瘍による内尿道口, 外尿道口の機械的な閉塞や尿道の偏位が尿閉の原因と考えられた。

標本重量は記載のあった86例で平均32.2 g (1.5~340 g) であり, そのうち排尿障害を来した症例で平均 59.8 g (1.8~240 g), 尿閉を来した症例で平均 69.25 g (12~194 g) と平均標本重量は排尿障害の程度とともに大きくなる傾向であった。しかしながら, 3 g で排尿障害を来した症例がある一方⁷⁾, 340 g で排尿障害を認めなかった症例があることから⁸⁾, 標本重量のみならず, 発生部位も排尿障害に対する重要な因子と考えられた。

傍尿道平滑筋腫の画像診断には骨盤部 MRI が有用であり T1 強調像で筋肉と低~等信号, T2 強調像で筋肉と等~高信号を呈する⁹⁾。他の臓器に発生した平滑筋腫と平滑筋肉腫の鑑別は困難とされている¹⁰⁾。傍尿道平滑筋肉腫の報告はこれまでに認めないが, 婦人科領域では膣壁腫瘍として膣平滑筋肉腫をはじめとする悪性腫瘍の報告がある¹¹⁾。そのため, 鑑別診断としては尿道カルンクル, 尿道憩室, 尿道脱, コンジローマ, Gartner 管嚢胞, Skene 腺嚢胞などの良性疾患のほか, 尿道癌や膣悪性腫瘍の可能性を考慮する必要がある, 病理学的診断を要する。術前に鑑別が困難である場合には生検が必要と思われる。

治療は外科的摘除が基本とされており, 腫瘍発生部位と摘除方法について記載のあった71例で術式の検討を行った (Table 3)。71例中62例 (87%) の症例で経膣的に摘除されていた。腫瘍が大きい場合は経膣的摘除に経腹的摘除も併用されており, 本症例も同様の方法で行った¹²⁾。内尿道口部に発生するタイプでは TUR や膀胱高位切開での治療報告がある^{7, 13)}。子宮筋腫と同様にホルモン治療の可能性は示唆されるがこれまでに行われた報告はない¹⁴⁾。

Table 1. Chief complaints of paraurethral leiomyoma in Japan (134 cases)

主訴	症例数	%
外陰部腫瘍	99	74
排尿症状	41	31
排尿障害	13	9.7
尿閉	7	5.2
排尿時痛	6	4.5
尿線散乱	6	4.5
尿失禁	5	3.7
頻尿	4	3
外陰部出血	24	18
外陰部痛	7	5.2
外陰部違和感	6	4.5
その他	3	2.2

Table 2. Characteristics of paraurethral leiomyoma causing urinary retention (7 cases)

症例	報告者	年齢	発生部位	径 (cm)	重量 (g)	到達方法
1	永井	67	後壁 (尿道全長)	5×5×6	40	経膣
2	小林	24	外尿道口部	3×2×2	NA	経膣
3	山本	51	内尿道口	5	31	膀胱高位切開
4	峰	41	外尿道口部 (前壁)	NA	NA	経膣
5	安土	65	内尿道口	3×3.2×2.8	12	膀胱高位切開
6	石井	26	後壁	2.5	NA	経膣
7	自験例	44	内尿道口	8×7×4.5	194	経膣+経腹

NA; not available.

Table 3. Location in the urethra and operative procedures (71 cases)

到達方法 \ 発生部位	前壁	後壁	側壁	内尿道口	合計
経膣	22	32	8	0	62
TUR	0	0	0	3	3
経膣+経腹	1	1	0	1	3
膀胱高位切開	0	1	0	2	3
合計	23	34	8	6	71

術後の経過観察に関しては必要とする文献は多いが長期経過観察を示した報告はない。再発例は稀であり、悪性化の報告はないため長期経過観察の必要性は乏しいかもしれない^{15,16)}。

性成熟期女性の尿閉を含む排尿障害では、本疾患のような下部尿路閉塞を起こす腫瘍性病変も念頭において鑑別を進めることが必要と考えられた。

結 語

今回、われわれは尿閉を来した女性傍尿道平滑筋腫の1例を経験した。本邦報告143例について年齢、主訴、発生部位、標本重量、術式の検討を行い、特に排尿障害および尿閉について考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第228回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Stutterecker D, Umek W, Tunn R, et al.: Leiomyoma in the space of retzius: a report of 2 cases. *Am J Obstet Gynecol* **185**: 248-249, 2001
- 2) 武本征人, 高羽 津: 傍尿道腫瘍の1例. *泌尿紀要* **18**: 847-850, 1972
- 3) 山田 一, 三馬省二, 河田陽一, ほか: 傍尿道腫瘍(神経鞘腫)の1例. *泌尿器外科* **4**: 195-197, 1991
- 4) Kato T, Kobayashi T, Ikeda R, et al.: Urethral leiomyoma expressing estrogen receptors. *Int J Urol* **11**: 573-575, 2004
- 5) Saad AG, Kaouk JH, Kaspar HG, et al.: Leiomyoma of the urethra: report of 3 cases of a rare entity. *Int J Surg Pathol* **11**: 123-126, 2003
- 6) Brodsky SV, Gimenez C, Ghosh C, et al.: Estrogen and progesterone receptors expression in gastrointestinal stromal tumors and intramural gastrointestinal leiomyomas. *Int J Gastrointest Cancer* **37**: 129-132, 2006
- 7) 松下 靖, 尾張幸久, 工藤茂高, ほか: TUR が有効であった女性尿道平滑筋腫の1例. *泌尿器外科* **13**: 699-702, 2000
- 8) 前田浩志, 原 勲, 井谷 淳, ほか: 女子傍尿道平滑筋腫の1例. *西日泌尿* **51**: 97-101, 1989
- 9) Hubert KC, Remer EM, Rackley RR, et al.: Clinical and magnetic resonance imaging characteristics of vaginal and paraurethral leiomyomas: can they be diagnosed before surgery? *BJU Int* **105**: 1686-1688, 2010
- 10) Matsuda M, Ichimura T, Kasai M, et al.: Preoperative diagnosis of usual leiomyoma, atypical leiomyoma, and leiomyosarcoma. *Sarcoma* 2014: 498682, 2014
- 11) Khosla D, Patel FD, Kumar R, et al.: Leiomyosarcoma of the vagina: a rare entity with comprehensive review of the literature. *Int J Appl Basic Med Res* **4**: 128-130, 2014
- 12) 倉本朋未, 西澤 哲, 森 喬史, ほか: 切除重量が100 gを超えた女性傍尿道平滑筋腫の1例. *泌尿紀要* **54**: 677-680, 2008
- 13) 安土正裕, 鈴木一正, 木暮輝明: 内尿道口部に発生した尿道平滑筋腫. *臨泌* **50**: 523-525, 1996
- 14) Kurokawa S, Kojima Y, Tozawa K, et al.: Female paraurethral leiomyoma: immunohistochemical approach to the relationship between leiomyoma and ovarian hormones. *J Urol* **167**: 1403-1404, 2002
- 15) Lake MH, Kossow AS and Bokinsky G: Leiomyoma of the bladder and urethra. *J Urol* **125**: 742-743, 1981
- 16) Shen YH and Yanq K: Recurrent huge leiomyoma of the urethra in a female patient: a case report. *Oncol Lett* **7**: 1933-1935, 2014

(Received on May 28, 2015)
(Accepted on July 23, 2015)