

●症 例

出産後に血気胸を発症した胸腔内子宮内膜症の1例

神宮 大輔 矢島 剛洋 生方 智
庄司 淳 高橋 洋 渡辺 洋

要旨：症例は36歳，女性．生来健康，先行する外傷歴なし．受診11日前に第一子を自然分娩で出産した．受診前日，咳嗽後より右前胸部痛が出現し，右血気胸の診断で入院加療とした．待機的に全身麻酔下胸腔鏡検査を施行し，横隔膜腱様部に欠損孔およびblueberry spotを認めた．Blueberry spotの一部を生検し，病理にて胸腔内子宮内膜症の診断となった．出産後に血気胸を発症し，同時に胸腔内子宮内膜症が確認された例はなく，胸腔内子宮内膜症の病態を検討するうえで貴重な症例と考えられ，報告する．

キーワード：血気胸，胸腔内子宮内膜症，子宮内膜症，月経随伴性気胸，産後

Hemopneumothorax, Thoracic endometriosis, Endometriosis, Catamenial pneumothorax, Postpartum

緒 言

若年女性の気胸の原因として，月経随伴性気胸が知られている．月経随伴性気胸は胸腔内子宮内膜症が原因で，月経周期に伴う性ステロイドホルモンの変動により発症する¹⁾．しかし，今回我々は，出産後に血気胸を発症し，胸腔内子宮内膜症の診断に至った症例を経験した．

症 例

患者：36歳，女性．

主訴：右前胸部痛．

既往歴：生来健康．妊娠中および出産時の合併症なし．中絶歴なし．月経周期に一致した胸痛歴なし．

家族歴：なし

喫煙歴：なし．

現病歴：受診11日前に第一子を自然分娩で出産した．受診前日，咳嗽後より右前胸部痛が出現した．近医を受診し，右水気胸の診断で当科紹介となった．精査加療目的に同日入院した．

入院時身体所見：意識清明，体温37.4℃，血圧132/80 mmHg，脈拍123回/min・整，経皮的動脈血酸素飽和度(SpO₂)97% (室内気)，右呼吸音の減弱あり．その他，

特記所見なし．

入院時画像所見：胸部X線写真では右肺にII度の気胸と胸水貯留が認められた(図1A)．胸部単純CTでも右水気胸が確認されたが，明らかな肺内病変および胸膜病変は確認されなかった(図1B)．

入院時血液検査所見(表1)：炎症反応の軽度上昇，小球性貧血を認めた．エストラジオールおよびプロゲステロン値は非妊娠時に相当する値であった．

入院後経過：右胸水の性状確認のため，試験穿刺を実施した(表2)．胸水の外観は血性でヘモグロビン値が11.8 g/dlと高値であったことから血気胸と診断した．胸水細胞診はClass IIでセルブロックでも特記すべき所見は認められなかった．血清CA125 90 U/ml，胸水CA125 263 U/mlであった．胸部打撲などの先行外傷歴はなく外傷性血気胸は否定的であり，症状出現時期からは受診前日の発症と考えられた．胸腔ドレーン挿入直後に400 mlの血性胸水が排液されたが，第2病日までに合計550 mlの排液のみで停止した．Air leakageも第3病日には停止した．血気胸の原因検索および血腫除去目的に第7病日に待機的に全身麻酔下胸腔鏡検査を施行した．

術中所見(図2)：右横隔膜腱様部に直径3 mmほどのblueberry spotを認め，それに近接したスリット状の欠損孔を複数確認した．Blueberry spotの一部から生検を施行した．Blueberry spotと欠損孔を含む部位をネオパール®とボルヒール®を用いて被覆した．また，肺尖部の臓側胸膜面および鎖骨下胸膜上の壁側胸膜に付着した血腫様の構造を認め，肺尖部縦隔側と前縦隔の間に索状物を確認した．手術時には，出血またはair leakageは認

連絡先：神宮 大輔

〒985-8506 宮城県塩釜市錦町16-5

宮城厚生協会坂総合病院呼吸器科

(E-mail: d.jinguuu@gmail.com)

(Received 14 Mar 2016/Accepted 12 Jul 2016)

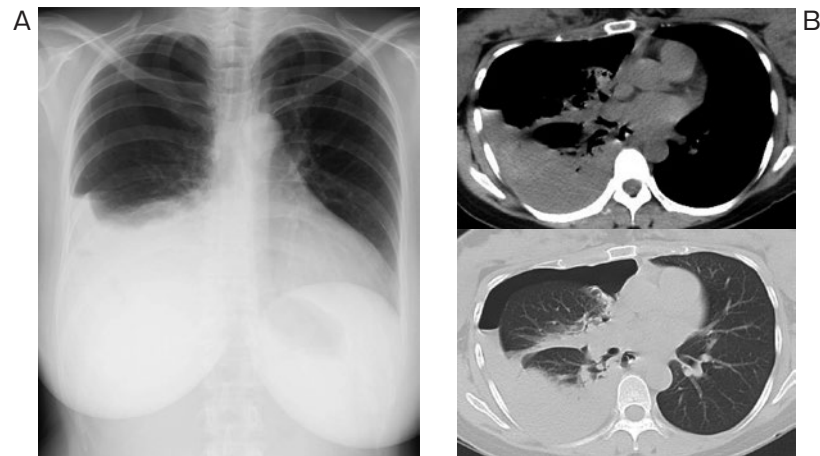


図1 入院時画像所見. (A) 胸部X線写真, (B) 胸部単純CT. 入院時画像所見では, 右肺のII度気胸と胸水貯留が確認されたが, 明らかな肺内病変および胸膜病変は確認されなかった.

表1 入院時血液検査所見

生化学		血算		内分泌・腫瘍マーカー	
CRP	2.96 mg/dl	WBC	12,300/μl	CA125	90 U/ml
AST	16 U/L	Neut	81.3%	(正常値)	<35 U/ml
ALT	11 U/L	Lym	13.2%	エストラジオール*	13 pg/ml
ALP	292 U/L	Mon	4.8%	プロゲステロン†	0.2 ng/ml
γ-GTP	9 U/L	Eos	0.6%		
T-Bil	0.4 mg/dl	RBC	386 × 10 ³ /μl		
LDH	184 U/L	Hb	10.4 g/dl		
CK	61 U/L	Ht	31.6%		
Na	141 mEq/L	Plt	36.2 × 10 ³ /μl		
K	3.7 mEq/L				
BUN	9.3 mg/dl	凝固			
Cr	0.33 mg/dl	PT-%	84.1%		
TP	6.8 g/dl	PT-INR	1.19		
Alb	3.7 g/dl	APTT	30.9秒		

妊娠後期の基準値: *1,760~41,600 pg/ml, †65.2~221 ng/ml.

表2 胸水所見

性状	血性
総細胞数	7,100/μl
単核球	1,600/μl
分葉核球	5,500/μl
Hb	11.8 g/dl
pH	7.5
LDH	321 U/L
TP	6.1 g/dl
Alb	3.2 g/dl
糖	80 mg/dl
ヒアルロン酸	47,100 ng/ml
CA125	263 U/ml
細胞診	Class II
セルブロック	悪性所見なし

めなかった. 再発予防と組織学的評価目的に臓側胸膜上の血腫様構造および索状物を含む肺尖部を切除した.

病理所見: 横隔膜の blueberry spot の生検検体では, 横隔膜面の肥厚した壁側胸膜表層内に免疫染色でプロゲステロン受容体 (progesteron receptor: PR) およびエストロゲン受容体 (estrogen receptor: ER) 陽性の紡錘形間質細胞の集簇を認めた (図3). 右肺尖部生検検体では, 肉眼所見で血管腫様構造に該当した部位には限局性の線維化, 血管増生および出血後変化を示唆する炎症細胞浸潤を確認した. しかし, 肺尖部生検組織内には PR もしくは ER 陽性の細胞は認められず, ブラも確認されなかった. また, 右肺尖部の索状物は線維素性滲出物が固化したもので, 内部に破綻血管は認めなかった.

術後経過: 経過は良好で, 術後3日目に胸腔ドレーンを抜去し, 術後7日目に退院した. 婦人科領域に異所性

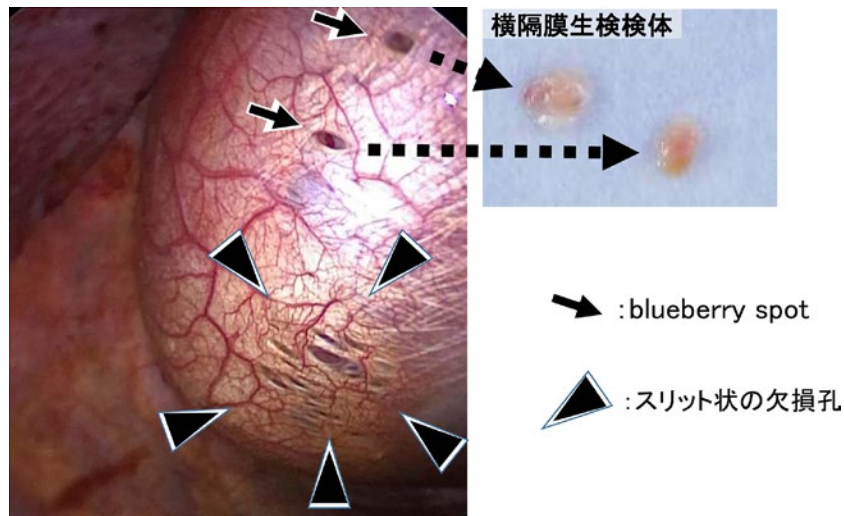


図2 術中所見および横隔膜生検検体. 横隔膜腱様部に blueberry spot を認め、その近傍にスリット状の欠損孔を複数認めた. Blueberry spot の一部を生検した.

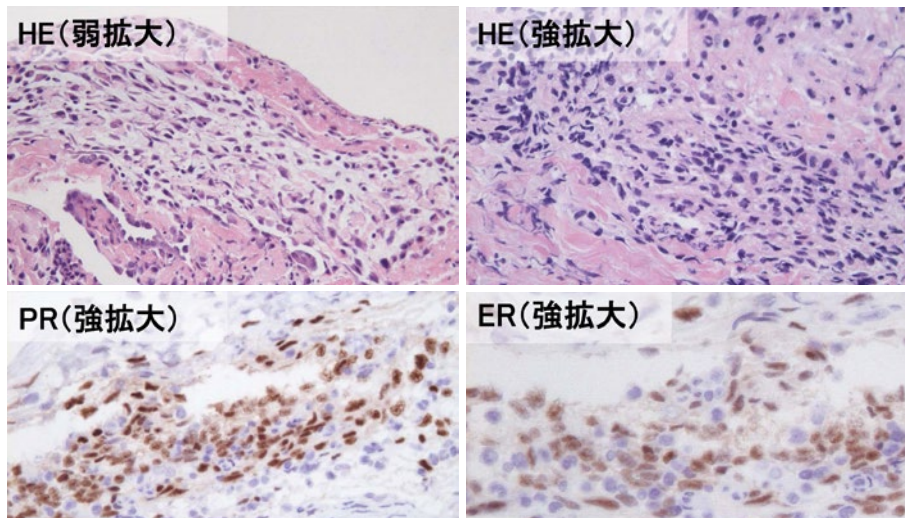


図3 横隔膜生検検体の病理所見. 横隔膜面の肥厚した壁側胸膜表層内に免疫染色でプロゲステロン受容体 (PR) およびエストロゲン受容体 (ER) 陽性の紡錘形間質細胞の集簇を認めた.

子宮内膜は確認されなかった. 発症後6ヶ月経過し、月経も再開したが、血気胸の再発はなく経過したため、当科での加療は終了とした.

考 察

周産期に気胸を発症した報告例は散見される. しかし、ほとんどの報告は出産中または出産直後の発症で、分娩時の努責や挿管管理に伴う胸腔内圧の上昇が原因と考えられており²⁾、自験例のように、出産後数日以上経過してから血気胸を発症した報告例はきわめてまれである.

胸腔内異所性子宮内膜症による月経随伴性気胸または血気胸は、多数の既存報告がある. 月経随伴性気胸の生

理学的な発症機序としては、正常な子宮内膜の脱落膜化と同様、性ステロイドホルモンにより刺激され増殖した胸腔内子宮内膜が性ステロイドホルモン減少により脱落膜化することで発症する (hormonal withdrawal)³⁾と考えられている. また、解剖学的な発症機序はいくつかの説がある. 代表的な説の一つは空気腹腔由来説で、月経時に子宮頸部の粘液栓が外れ、子宮、卵管を通じて腹腔内に入った空気が先天的または横隔膜子宮内膜の脱落により生じた横隔膜の欠損孔を通じて胸腔内に入り、気胸を発症するという説である. 一方、肺・胸膜子宮内膜症説は、臓側胸膜の異所性子宮内膜組織が月経時脱落し気胸を起こす、または末梢気道の異所性子宮内膜組織が月経時に

膨張してチェックバルブとなり末梢気道の気腫性変化を起し、これが破裂して気胸となるという説である⁴⁾。

伴場らの提唱する月経随伴性気胸の診断基準¹⁾では、①月経開始前3日前から5日後くらいまでの間に発症する、②発症頻度は2ヶ月に1回以上の間隔で3回以上の気胸がみられる、③発症頻度が少ない場合、手術的に横隔膜欠損孔、胸腔内子宮内膜症が証明されること、あるいは両者ともみられない場合には、ブラ、プレブが存在しないことが重要である、とされている。本症例は出産後の初発の血気胸であり、診断基準の①および②には該当しないが、診断基準の③に合致した。

そのことから、本症例の病態も月経随伴性気胸と同様の機序で発症した可能性が考えられた。正常分娩の場合、出産後には月経周期よりもさらに大きな性ステロイドホルモンの変動が生じる。性ステロイドホルモンであるエストロゲンおよびプロゲステロンは妊娠の進行とともに著明に上昇し、妊娠末期には非妊娠時の数十倍になる⁵⁾。分娩時をピークとし、産褥4~7日目には非妊娠時レベルに戻る⁶⁾。本症例では血中エストロゲンおよびプロゲステロン濃度は正常範囲であり、出産後から発症時までの間に性ステロイドホルモンが急激に減少し (hormonal withdrawal)、非妊娠時の血中濃度に戻ったことで、胸腔内子宮内膜が脱落膜化した可能性が高いと考えられた。流産処置後に血気胸を発症した報告でも本症例と同様に流産処置前後での性ステロイドホルモンの変動により血気胸を発症したと考察していた⁷⁾。

本症例では、blueberry spotの生検組織でPRおよびER陽性の紡錘形間質細胞の集簇が認められており、胸腔内子宮内膜症に合致した所見を得られた。Blueberry spotに近接した横隔膜欠損孔は子宮内膜組織の破綻により形成された可能性が高く、月経随伴性気胸における空気腹腔由来説と同様の機序で発症したと考えられた。一方、肺尖部生検組織においてPRまたはER陽性細胞は確認できず、ブラも確認されなかった。開胸術または胸腔鏡施行例の組織診で内膜症が確認できたのは20%以下⁸⁾にすぎず、自験例の右肺生検組織の組織変化からは内膜組織破綻後の変化である可能性も否定できなかったが、明らかな欠損孔が認められたことから、横隔膜病変を第一の責任病巣と判断した。

そのほか、胸腔内子宮内膜症の補助診断として用いられる血清および胸水検体におけるCA125値の上昇⁹⁾も、本症例では確認された。

一方、これまでの月経時に症状を認めず出産後に症状を呈した原因として、いくつかの要因が考えられた。気胸単独発症例と比較して血胸に至った症例では、胸腔内子宮内膜を視認できる場合が有意に多いと報告されている¹⁰⁾。本症例もこれにあてはまる。性ホルモンの変動幅

は月経周期に伴うものよりも周産期のほうがはるかに大きい。通常、月経に伴う性ホルモンの変動では脱落膜化しなかった胸腔内子宮内膜が通常の月経時より増大し、出産に伴い脱落膜化した可能性が考えられた。

臨床経過、術中ならびに組織所見、生理学的機序、既存報告を含めた検討の結果、本症例は分娩後の性ステロイドホルモンの変動に伴い、胸腔内子宮内膜が破綻し、血気胸をきたした可能性が高いと考えられた。

出産を契機に血気胸を発症した胸腔内子宮内膜症の1例を経験した。異所性子宮内膜症の発症機序を考察するうえで、興味深い1例であり、出産後の気胸または血症に遭遇した場合、胸腔内子宮内膜症を鑑別に挙げる必要があると思われた。

謝辞：本症例の診断および治療につきご指導いただきました当院呼吸器外科 佐澤由郎先生、当院病理科 伊東干城先生、および当院スタッフに深謝いたします。

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) 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.
- 2) Harten JM, et al. Post partum pneumothorax: two case reports and discussion. Int J Obstet Anesth 2000; 9: 286-9.
- 3) Joseph-Vempilly J, et al. Thoracic endometriosis: Pathogenesis, epidemiology, and pathology. UpToDate May 07, 2015.
- 4) 中井玲子, 他. 異なる機序により再発を繰り返した月経随伴性気胸の一例. 日呼外会誌 2001; 15: 515-20.
- 5) 御手洗玄洋, 他編. ガイトン生理学 原著第11版. 東京: エルゼビア・ジャパン. 2010; 1095-6.
- 6) 丸尾 猛, 他編. 標準産婦人科学. 東京: 医学書院. 2004; 530-1.
- 7) 林 哲也, 他. 流産処置を契機に発症した横隔膜異所性子宮内膜症による気胸の1例. 胸部外科 2011-12; 64: 1201-3.
- 8) Joseph J, et al. Thoracic endometriosis syndrome: new observations from an analysis of 110 cases. Am J Med 1996; 100: 164-70.
- 9) 上杉考豊, 他. 胸腔洗浄液中CA125値が高値を示した月経随伴性気胸の1例. 日胸臨 2013; 72: 1275-9.
- 10) 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.

Abstract

A case of thoracic endometriosis with hemopneumothorax in postpartum period

Daisuke Jingu, Takehiro Yajima, Satoshi Ubukata,
Makoto Shoji, Hiroshi Takahashi and Hiroshi Watanabe
Department of Respiratory Medicine, Saka General Hospital

A 36-year-old healthy female, who had undergone a normal delivery 11 days earlier, was admitted to our hospital because of a right chest pain. We diagnosed right hemopneumothorax, and performed video-assisted thoracoscopy. Blueberry spots, endometrial implants, are visualized on a diaphragmatic surface in proximity to diaphragmatic perforations. We performed a biopsy from a blueberry spot and confirmed endometrial stroma. To our knowledge, this is the first case report of hemopneumothorax with thoracic endometriosis syndrome in a postpartum period. This report may be useful for elucidation of the pathogenesis of thoracic endometriosis.