

PRIMARY RETICULUM CELL SARCOMA OF THE UTERUS
CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

子 宮 の 原 発 性 細 網 肉 腫
症 例 報 告 お よ び 文 献 の 検 討

ROBERT W. CIHAK, M.D.

JIRO HAMADA, M.D. 浜田二郎



ATOMIC BOMB CASUALTY COMMISSION

国立予防衛生研究所－原爆傷害調査委員会

JAPANESE NATIONAL INSTITUTE OF HEALTH OF THE MINISTRY OF HEALTH AND WELFARE

TECHNICAL REPORT SERIES

業 績 報 告 書 集

The ABCC Technical Reports provide the official bilingual statements required to meet the needs of Japanese and American staff members, consultants, advisory councils, and affiliated government and private organizations. The Technical Report Series is in no way intended to supplant regular journal publication.

ABCC業績報告書は、ABCCの日本人および米人専門職員、顧問、評議会、政府ならびに民間の関係諸団体の要求に応じるための日英両語による記録である。業績報告書集は決して通例の誌上発表に代るものではない。

PRIMARY RETICULUM CELL SARCOMA OF THE UTERUS

CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

子宮の原発性細網肉腫

症例報告および文献の検討

ROBERT W. CIHAK, M.D.

JIRO HAMADA, M.D. 浜田二郎

ATOMIC BOMB CASUALTY COMMISSION
HIROSHIMA AND NAGASAKI, JAPAN

A Cooperative Research Agency of
U.S.A. NATIONAL ACADEMY OF SCIENCES — NATIONAL RESEARCH COUNCIL
and
JAPANESE NATIONAL INSTITUTE OF HEALTH OF THE MINISTRY OF HEALTH AND WELFARE

with Funds Provided by
U.S.A. ATOMIC ENERGY COMMISSION
U.S.A. NATIONAL CANCER INSTITUTE
U.S.A. NATIONAL HEART AND LUNG INSTITUTE
U.S.A. ENVIRONMENTAL PROTECTION AGENCY
JAPANESE NATIONAL INSTITUTE OF HEALTH

米国学士院—学術会議と日本国厚生省国立予防衛生研究所
との日米共同調査研究機関

米国原子力委員会, 米国癌研究所, 米国心臓・肺臓研究所
米国環境保護庁および日本国厚生省国立予防衛生研究所
の研究費による

PRIMARY RETICULUM CELL SARCOMA OF THE UTERUS
CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE子宮の原発性網織肉腫
症例報告および文献の検討

ROBERT W. CHAK, M.D.

JIRO HAMADA, M.D. 第二著者

ACKNOWLEDGMENT

謝 辞

We wish to thank Dr. Henry J. Norris of the Armed Forces Institute of Pathology for his collaboration in reviewing the material of this case, as well as Dr. Arthur Steer of ABCC for his help in the preparation of this report.

本例の組織材料の検討にご協力下さった米軍病理研究所の Dr. Henry J. Norris および本報告書の作成にあたりご援助下さった ABCC の Dr. Arthur Steer に対して感謝の意を表します。

CONTENTS

目 次

Summary 要 約	1
Introduction and case report 緒言および症例報告	1
Discussion 考 察	7
References 参考文献	9
 Table 1. Primary malignant lymphomas of the uterus reported in the medical literature	
表 子宮の原発性悪性リンパ腫, 医学文献における報告例	6
 Figure 1. Gross findings of reticulum cell sarcoma of the uterus	
図 子宮の細網肉腫の肉眼的所見	3
2. Histological findings of the tumor (1)	
腫瘍の組織学的所見	4
3. Histological findings of the tumor (2)	
腫瘍の組織学的所見	4

Approved 承認 1 July 1972

PRIMARY RETICULUM CELL SARCOMA OF THE UTERUS

CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

子宮の原発性細網肉腫

症例報告および文献の検討

ROBERT W. CIHAK, M.D.^{1*}; JIRO HAMADA, M.D. (浜田二郎)^{2**}Department of Pathology, ABCC¹ and Hamada Clinic²ABCC 病理部¹ および浜田医院²

SUMMARY

Primary reticulum cell sarcoma of the uterine cervix was found at autopsy in a 90-year-old woman. This is the third reported patient with this disease in whom autopsy examination was performed. Twenty reported instances of primary malignant lymphoma in the uterus were found in addition. It appears from the small number of reports that, with therapy primary uterine lymphomas have a better prognosis than other uterine sarcomas and may also have a better survival rate than patients with other extranodal lymphomas of similar histologic type. Radiation therapy has been the principal modality employed for primary uterine lymphomas.

INTRODUCTION AND CASE REPORT

Primary malignant lymphoma of the uterus is rare. Of the reported cases, most have been of the reticulum cell type and of these only two included autopsy examination results. Recently a primary reticulum cell sarcoma was found at autopsy in the uterus of a 90-year-old woman. This report describes the findings in this case and presents a literature review of primary malignant lymphoma of the uterus.

要 約

90歳の婦人の剖検時、子宮頸管部の細網肉腫が発見された。これは剖検で認められた本疾患の第3番目の報告例である。文献ではその他に子宮に原発する悪性リンパ腫20例が報告されている。このように報告例が少ないことは、子宮の原発性リンパ腫の治療による予後が、他の子宮肉腫の場合よりも良好であり、また同じような組織学的型の他のリンパ節外リンパ腫よりも生存率が良好であることを示唆する。原発性子宮リンパ腫に対する主要な物理療法は放射線療法であるということになっている。

緒言および症例報告

子宮の原発性悪性リンパ腫はまれである。報告例の中で、大部分のものは細網細胞型であり、しかも剖検結果の報告されたものは2例にすぎない。最近90歳の婦人の子宮に剖検によって原発性細網肉腫が認められた。本報告ではこの症例の所見について記述し、子宮の原発性悪性リンパ腫についての文献的検討を行なった。

*U.S. Public Health Service, Environmental Protection Agency, Office of Research and Monitoring Radiation Research, assigned to ABCC
米国公衆衛生局環境保護部調査研究および放射線監視技術開発部門所属医師、ABCCへ派遣

**Naka-fukawa, Koyo-cho, Asa-gun, Hiroshima Prefecture, Japan

広島県安佐郡高陽町中深川

Clinical Summary. The patient, a 90-year-old Japanese woman, was first examined by her private physician on 17 December 1971 because she complained of general malaise and elbow and knee pain of 10 days duration. She was found to be afebrile and in moderate discomfort. There were no symptoms referable to the pelvic region. Her abdomen was noted to be distended. Symptomatic treatment was given with relief of her joint pains. On 25 December 1971, she complained of vomiting and right upper quadrant abdominal pains, and 2 days later developed general edema. She refused hospitalization and supportive therapy was continued at home. She died 13 January 1972.

Gross Autopsy Findings. At autopsy, examination revealed a well-developed, well-nourished Japanese female measuring 144cm in length and weighing 39Kg. There were no external abnormalities except for 4+ pitting edema of the right lower extremity. No edema was noted on the left. On opening the abdomen the uterus was found to be symmetrically enlarged with the fundus at the pelvic brim. The serosal covering of the uterus was smooth and glistening. The adnexae including the ovaries and tubes did not appear grossly involved by any infiltrative process. The right iliac vein was surrounded by pale grey, homogeneous, moderately firm tumor measuring 2.5cm in greatest diameter. A fresh thrombus occluded the lumen of this vessel. The lymph nodes of the right and left inguinal and iliac chains and the para-aortic nodes about the lower portion of the aorta, were enlarged up to 2cm in diameter. The cut surfaces of the lymph nodes typically were pale grey, homogeneous and glistening.

The uterus was diffusely enlarged, measuring 13.5cm in total length. The serosal surface of the uterus was smooth and glistening. The exocervix measured 3.0×3.5cm in cross section and presented a smooth surface. Tumor infiltration was seen in the vaginal wall enclosing the vaginal fornices. Section of the uterus revealed the wall to be diffusely infiltrated by tumor and thickened up to 5.5cm in the cervix and lower uterine segment, and up to 1cm in the fundic portion (Figure 1). The parametrial tissues were infiltrated by tumor extending from the cervix and lower uterine segment and measured up to 2.5cm in thickness. The endometrial cavity was dilated up to a diameter of 4.5cm and was filled with a watery, dusky-red, opaque fluid. The cervical canal was completely obstructed by tumor.

The distal segments of both ureters were compressed by tumor and bilateral hydronephrosis were present. The posterior wall of the urinary bladder was adherent to the underlying uterus. The

臨床所見の総括: 本患者は90歳の日本婦人で、全身倦怠および10日間におよぶ肘と膝の痛みの訴えで、1971年12月17日、主治医の往診を受けた。患者は無熱で、中等度の苦痛があった。骨盤部と関係ある症状はなかった。腹部膨満が認められた。対症療法の結果関節痛は軽減した。12月25日、嘔吐および右上腹部痛を訴え、2日後全身に浮腫を生じた。入院を拒否したので、自宅で持続療法を続けた。患者は1972年1月13日死亡した。

肉眼的剖検所見: 剖検では発育栄養ともに良好な日本婦人で、身長144cm、体重39kg、右下肢の陥凹浮腫(4+)を除いては外見的には異常を認めなかった。左下肢に浮腫は認められなかった。内診の結果、子宮は対称性に肥大し、その底部は骨盤入口に認められた。子宮の漿膜被覆は円滑で、光沢を帯びていた。卵巣および卵管を含む子宮付属器には肉眼的浸潤は認められなかった。右腸骨静脈は淡灰色、均質、中等度硬度の最大径2.5cmの腫瘍により囲まれていた。新鮮な血栓がこの血管の内腔を閉塞していた。左右鼠径部と腸骨との連系のリンパ節、ならびに大動脈下部周囲のリンパ節は、直径2cmまで腫脹していた。リンパ節の断面は典型的であって淡灰色、均質、光沢性であった。

子宮は瀰漫性に肥大し、全長13.5cmであった。子宮の漿膜面は円滑、光沢性であった。子宮頸管外部の断面は3.0×3.5cmで、表面は円滑であった。腔壁に腫瘍浸潤を認め、それは腔円蓋を包んでいた。子宮切開により、子宮壁が腫瘍によって瀰漫性に浸潤され、子宮頸管部および子宮下部は5.5cmに、底部は1cmに肥厚していることが認められた(図1)。子宮頸管部および子宮下部から広がっている腫瘍により子宮旁結合織は浸潤され、その厚さは2.5cmに達していた。子宮内膜腔は径4.5cmにまで拡大し、水様、暗赤色、不透明液で満たされていた。子宮頸管は腫瘍により完全に閉塞されていた。

両側尿管の末端部は腫瘍により圧迫され、両側尿管水腫および水腎症があった。膀胱後壁は下に横たわる子宮と癒着していた。直接死因は腫瘍による尿管閉塞に続発す

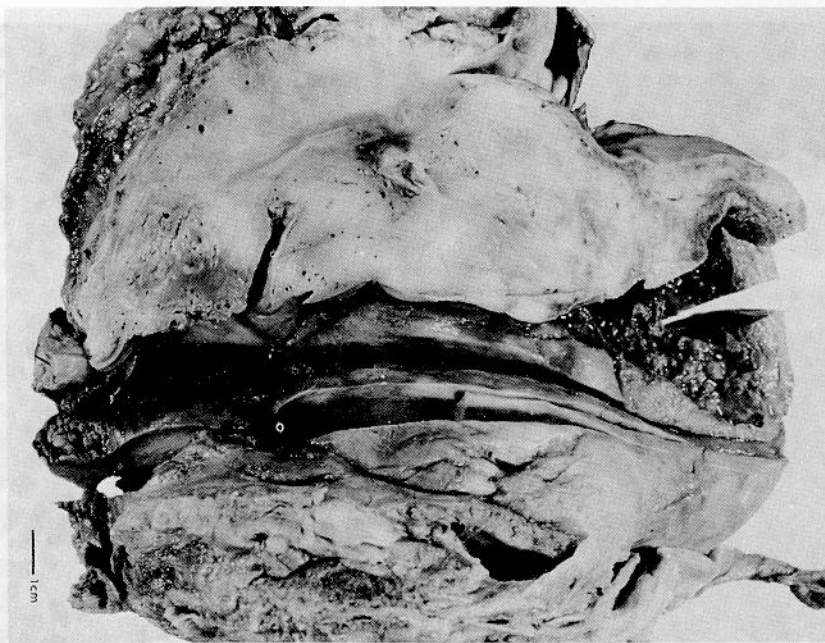


Figure 1 Reticulum cell sarcoma of the uterus, showing major involvement of the cervix with extension into the parametrial tissues and diffuse uterine enlargement due to diffuse tumor infiltration.

図1 子宮の細網肉腫。主として子宮頸管部をおかし、子宮旁結合組織および浸漫性腫瘍浸潤による浸漫性子宮肥大を示す。

immediate cause of death was renal failure secondary to tumorous obstruction of the ureters.

Incidental autopsy findings included several old fibrous pleural adhesions and bilateral centrilobular pulmonary emphysema of moderate degree. Other findings included a duodenal diverticulum, two benign adenomatous polyps of the colon, and a small leiomyoma at the gastroesophageal junction.

Microscopic Findings. In all histologic sections the tumor was characterized by an essentially unicellular population of loosely attached cells having numerous mitotic figures and prominent nuclear membranes characteristic of a reticulum cell sarcoma (Figure 2). In addition to the cervix, the tumor involved the upper vagina and paracervical soft tissues and invaded the myometrium of the uterine fundus. Microscopic foci of tumor were found in both ovaries and within the posterior wall of the urinary bladder. Lymph nodes of the bilateral inguinal, iliac, and lower paraaortic groups contained tumor but sections of lymph nodes of the cervical, supraclavicular, axillary and pulmonary hilar groups were free of tumor microscopically. Two microscopic tumor foci were found, one in the splenic hilar adipose tissue (Figure 3) and the other in mediastinal adipose tissue. The thrombus noted grossly in the right common iliac vein was found to be due to tumor invasion in histologic sections.

る腎機能不全であった。

付随的所見としては、数か所に陳旧性線維性肋膜癒着および両側の肺葉中心に中等度の肺気腫が認められた。その他に、十二指腸憩室、結腸の腺腫様ポリープ2個、および胃・食道接合部における小さな平滑筋腫が認められた。

鏡検所見：腫瘍の全組織切片において、細網肉腫の特徴であるところの多数の分裂像と核膜の顕著化とのある細胞の、本来は孤在的であるものが、ゆるやかにくっつき合っているのが特異所見として認められた(図2)。腫瘍は子宮頸管部以外に、膣上部および子宮頸管周囲軟組織をもおかし、子宮底部筋層をも侵襲した。両側卵巣および膀胱後壁内に腫瘍の顕微鏡的病巣を認めた。両側鼠径部、腸骨部および大動脈下部周囲のリンパ節には腫瘍が認められたが、頸部、鎖骨上部、腋窩部および肺門部リンパ節から採取した切片には、顕微鏡的にも腫瘍は認められなかった。他方において、別に顕微鏡的腫瘍巣の二つが認められたが、その一つ(図3)は脾門脂肪組織に、また他の一つは縦隔洞脂肪組織にあった。肉眼的に認められた右総腸骨静脈の血栓は組織切片における腫瘍侵襲によるものであることがわかった。

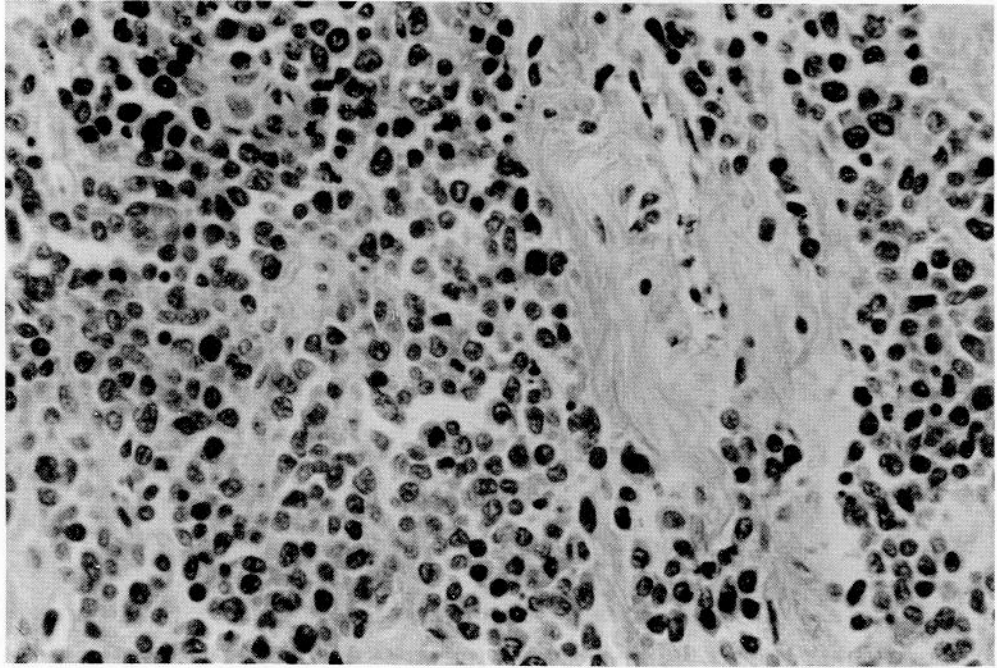


Figure 2 Typical microscopic appearance showing an essentially unicellular population of loosely attached cells with prominent nuclear membranes characteristic of a reticulum cell sarcoma. Mitotic figures were readily seen.

図2 典型的な顕微鏡像で細網肉腫の特徴であるところの連絡のゆるやかな本質的には単細胞の集団と核膜顕著化を示している。核分裂像が容易に認められる。

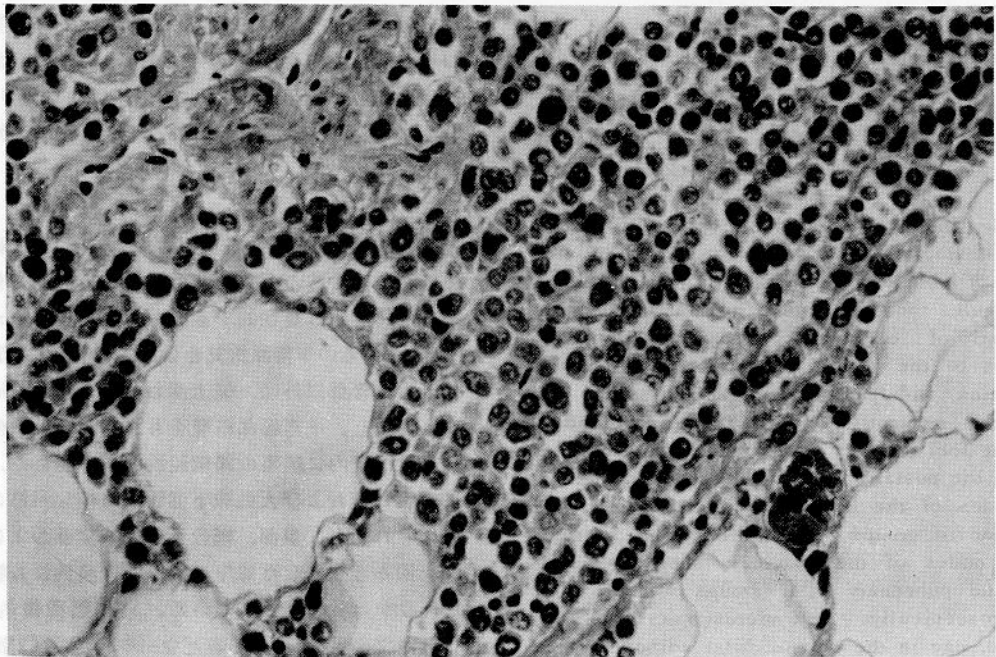


Figure 3 One of two distant foci of tumor found microscopically. The tumor cells are within splenic hilar adipose tissue. The splenic capsule is apparent in the lower portion of the photograph.

図3 互いに離れた位置にあった二つの腫瘍巣の中の一つの顕微鏡像。腫瘍細胞は脾門部脂肪組織の中にある。脾被膜が写真の下部に見える。

Review of the Literature. Table 1 lists the reported cases of malignant lymphomas thought to be primary in the uterus or uterine cervix.¹⁻¹⁷ Three of the 21 reported individuals with primary uterine lymphoma, including the present case, were autopsied. All of these women had reticulum cell sarcoma. Six of the 21 patients had died at the time of the report. Two living patients were said to have recurrence of their tumors. Five patients were alive and without recurrence from 18 months to 12 years after therapy. Eight other patients were alive without evidence of recurrence at the time of the report but they had been followed for approximately 1 year or less after diagnosis.

Radiation therapy was the principal therapeutic modality employed either alone or in combination with surgery or chemotherapy. Surgery was the only mode of therapy for one patient.

Walton,¹ reported two patients with primary lymphosarcoma of the uterus, one of whom was found to have lymphocytic leukemia subsequent to the discovery of the uterine lymphoma. Johnson and Soule² reported five patients with malignant lymphoma in whom the primary manifestation was gynecologic. One of these had a primary lymphosarcoma of the cervix while the other four apparently had developed secondary lymphomatous involvement of the uterus and vagina. Moores³ in reporting a single case of primary lymphosarcoma of the cervix, speculated that such tumors arose from the occasional germinal lymphoid follicles found in the cervix. Epperson⁴ described a woman with widespread reticulum cell sarcoma in whom the chief complaint was gynecologic. At autopsy the major tumor mass involved the uterus and ovaries.

The youngest patient with primary uterine lymphoma was reported by Vieaux and McGuire.⁶ This woman was 23 years old and was found to have a tumor of the cervix during pregnancy. After delivery the tumor was biopsied and diagnosed as reticulum cell sarcoma. She was living and well 2½ years later following radiation therapy. Lathrop⁹ reported two patients with reticulum cell sarcoma in one of whom the tumor was definitely primary in the cervix but in the other was described as being in the left paracervical area. This latter patient had undergone supracervical abdominal hysterectomy and bilateral salpingo-oophorectomy for leiomyoma of the uterus and "tumors of the ovaries, which were histologically benign" 3 years before the paracervical lymphoma was found.

Foa et al,¹³ using electron microscopy, described plasmacytic features within the tumor cells of a reticulum cell sarcoma of the uterine cervix. Aaro et al,⁸ in reporting two women with primary

文献の検討: 表1に子宮または子宮頸管部に原発したと考えられる悪性リンパ腫の報告例をあげる.¹⁻¹⁷ 原発性子宮リンパ腫の21報告例のうち、本例を含めて3例において剖検が行なわれた。剖検された全例には細網肉腫が認められた。21例中6例は、報文公表時すでに死亡していた。生存中の2例に再発が認められた。5例では治療後18か月ないし12か年の間に再発は認められないで生存していた。報告発表時に、別の8例も生存しており、再発の徴候はなかったが、追跡期間は約1年またはそれ以下であった。

おもな治療方式は放射線療法であって、それ単独のこともあり、あるいは外科手術または化学療法と併用されていた。1例では外科手術のみが用いられた。

Walton¹は原発性子宮リンパ肉腫2例について報告し、そのうち1例は子宮リンパ腫発見後にリンパ球性白血病が認められた。Johnson および Soule²は婦人科系器官が原発部位であった悪性リンパ腫5例について報告した。これらのうち1例は原発性子宮頸管リンパ肉腫であったが、他の4例は子宮および膣部の続発性リンパ腫侵襲のようであった。Moores³は原発性子宮頸管リンパ肉腫1例についての報告で、このような腫瘍は子宮頸管部に時として見られる細菌性リンパ様濾胞から発現すると推測した。Epperson⁴は広範囲に広がった細網肉腫の1女性例について報告したが、その主訴は婦人科系のものであった。剖検では、主要腫瘍塊が子宮および卵巣をおかしていることが認められた。

原発性子宮リンパ腫の最も若い年齢の症例は Vieaux および McGuire⁶ によって報告された。この婦人は23歳で、妊娠中に子宮頸管腫瘍が認められた。分娩後、腫瘍の生検を受け、細網肉腫と診断された。放射線療法後2年半の時点では健在であった。Lathrop⁹は細網肉腫2例について報告したが、そのうち1例では腫瘍は子宮頸管に原発していることが確認された。もう1例では、腫瘍は左側旁子宮頸管に認められた。後者の例は旁子宮頸管リンパ腫が発見される3年前に、子宮平滑筋腫および卵巣腫瘍のため頸管上部腹式子宮切除術および両側卵巣卵管切除術を受け、いずれも組織学的に良性であった。

Foa ら¹³は電子顕微鏡を用いて、子宮頸管細網肉腫の腫瘍細胞内における形質球の特徴について報告した。Aaro ら⁸は原発性子宮細網肉腫の2女性例について報告したが、

TABLE 1 PRIMARY MALIGNANT LYMPHOMAS OF THE UTERUS REPORTED IN THE MEDICAL LITERATURE

表1 子宮の原発性悪性リンパ腫, 医学文献における報告例

Author 著者	Year 発表年	Age 年齢	Site 部位	Basis of Diagnosis 診断の基礎	Mode of Therapy 治療方式	Time free of Recurrence 再発のなかった期間	Comment 注
I. Lymphosarcoma (4 reported cases) リンパ肉腫 (4 報告例)							
Walton ¹	1953	36	Endometrium (lymphocytic type) 子宮内膜 (リンパ球型)	Biopsy-Subsequent hysterectomy 生検—その後子宮切除	Surgery and Radiotherapy 外科手術および 放射線療法	No long-term follow-up 長期追跡調査 を行わず	
		88	Cervix 子宮頸管部 (lymphocytic type) (リンパ球型)	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	Died 1 year after diagnosis 診断後1年で死亡	Found to have lymphocytic leukemia リンパ球性白血病と判明
Johnson and Soule ²	1957	49	Cervix and Endometrium 子宮頸管部および 子宮内膜	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	12 ½ years* (4 years in original report) (原報告当時は4年)	12年半*
Moore ³	1965	49	Cervix ("Lymphocyte reticulocyte" type) 子宮頸管部(リンパ 球性細胞網細胞型)	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	"Months" 「数か月間」	
II. Reticulum Cell Sarcoma (13 cases) 細胞肉腫 (13例)							
Epperson ⁴	1950	42	Generalized with major genital involvement 全身性のもので主 として性器	Biopsy 生検 Autopsy 剖検	Radiotherapy 放射線療法	Died 3 mos. after diagnosis 診断後3か月 で死亡	Presented with prolonged vaginal bleeding 長期膣出血あり
Welch and Hellwig ⁵	1963	47	Cervix 子宮頸管部	Biopsy; hystere- ctomy specimen 生検; 子宮切除標本	Radiotherapy; Surgery 放射線療法; 外科手術	9 months 9か月	
Vieaux and McGuire ⁶	1964	23	Cervix 子宮頸管部	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	2 ½ years 2年半	Associated with preg- nancy 妊娠中
Volpe ⁷	1965	43	Uterus 子宮	Biopsy; hystere- ctomy specimen 生検; 子宮切除標本	Radiotherapy; Surgery 放射線療法; 外科手術	Osseous metas- tases noted 15 mos. after operation 手術15か月後に 骨転移を認めた	
Aaro et al ⁸	1966	40	Cervix 子宮頸管部	Hysterectomy specimen 子宮切除標本	Surgery; Radiotherapy 外科手術; 放射線療法	6 ½ years 6年半	
		63	Cervix (within a polyp) 子宮頸管部(ポリープ内)	Uterine curettage 子宮掻爬	Surgery 外科手術	8 years 8年	
Lathrop ⁹	1967	54	Left paracervical area 左子宮頸管周囲部	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	Died 4 years after diagno- sis 診断後4年 で死亡	Patient had supracervical hysterectomy and BSO 3 years previous for benign ovarian tumors 3年前良性卵巣腫瘍のため 子宮切除および両側卵巣卵 巣摘出術を受けた
		62	Cervix 子宮頸管部	Biopsy; hysterectomy specimen; Autopsy 生検; 子宮切除標本; 剖検	Surgery; Radiotherapy 外科手術; 放射線療法	Died 1 year after diagnosis 診断後1年で死亡	
Toth and Csömör ¹⁰	1967	43	Cervix 子宮頸管部	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	Died 1 ½ years post diagnosis 診断後1年半で死亡	
Prive and Dumont ¹¹	1968	43	Cervix 子宮頸管部	Biopsy; hystere- ctomy specimen 生検; 子宮切除標本	Radiotherapy; Surgery 放射線療法; 外科手術	5 months 5か月	

* This patient was noted to be free of recurrence 12 ½ years after when Aaro et al reported on uterine sarcomas in 1966.

この患者は、Aaro が子宮肉腫に関して報告した1966年、すなわち12年半後の時点でも再発はなかった。

TABLE 1 表 1 続く

Author 著者	Year 発表年	Age 年齢	Site 部位	Basis of Diagnosis 診断の基礎	Mode of Therapy 治療方式	Time free of Recurrence 再発のなかった期間	Comment 注
Rotondi ¹²	1969	72	Cervix 子宮頸管部	Biopsy; hyster- ectomy specimen 生検; 子宮切除標本	Surgery; Chemotherapy 外科手術; 化学療法	No long-term follow-up Urinary bladder invasion noted 長期追跡調査を行わず 膀胱侵襲を認める	
Foa et al ¹³	1970	36	Cervix 子宮頸管部	Biopsy; hyster- ectomy specimen 生検; 子宮切除標本	Surgery; Radiotherapy 外科手術; 放射線療法	No long-term follow-up 長期追跡調査を 行わず	Plasmacyte features were described in the tumor cells 腫瘍細胞に形質球を認めた
Present case	1972	90	Uterus (Major involvement in cervix) 子宮(主として子宮頸管部)	Autopsy 剖検	None なし		First diagnosed at autopsy 剖検時に初めて診断された
III. Hodgkin's Lymphoma (4 cases) ホジキンリンパ腫(4例)							
Retikas ¹⁴	1960	48	Cervix 子宮頸管部	Biopsy 生検	Radiotherapy 放射線療法	3 years 3年	Reported as "Hodgkin's sarcoma in lymphosar- comatous base" リンパ肉腫を基礎とする Hodgkin 肉腫と報告され ている
Nasiell ¹⁵	1964	39	Cervix 子宮頸管部	Cytology; Biopsy; Hysterectomy specimen 細胞診; 生検; 子宮切除標本	Radiotherapy; Surgery 放射線療法; 外科手術	8 months 8か月	
Anderson ¹⁶	1967	40	Cervix, with spread to vagina, and utero- sacral ligament 子宮頸管部, 陰部およ び子宮仙骨靱帯に及ぶ	Hysterectomy specimen 子宮切除標本	Surgery; Radiotherapy 外科手術; 放射線療法	1 year 1年	Tumor found during elective hysterectomy for uterine myomata 腫瘍は子宮筋腫に対す る選択的子宫切除中に 発見
Lauro and Giornelli ¹⁷	1968	82	Cervix 子宮頸管部	Biopsy 生検	Radiotherapy; Chemotherapy 放射線療法; 化学療法	18 months 18か月	

uterine reticulum cell sarcoma noted that in one, the tumor was apparently confined to a single endocervical polyp since, after its removal by curettage, no residual tumor was found in the subsequent hysterectomy specimen. There was no recurrence of the tumor 6½ years thereafter. Other single case reports of primary uterine reticulum cell sarcoma have been contributed by Welch and Hellwig,⁵ Volpe,⁷ Toth and Csömör,¹⁰ Prive and Dumont,¹¹ and Rotondi.¹²

Nasiell¹⁵ reported a woman with Hodgkin's disease of the uterine cervix in whom the first indication of malignancy was a suspicious cytologic vaginal smear. Three other reports of primary uterine Hodgkin's disease were published by Retikas,¹⁴ Anderson,¹⁶ and Lauro and Giornelli.¹⁷

DISCUSSION

The patient in this report is presented as having primary reticulum cell sarcoma in the uterus because

その1例では掻爬術によって子宮頸管内膜のポリープ1個を除去したが, その後の子宮組織の検査では腫瘍は認められなかったので腫瘍はポリープ内に包含されていたようである. その後6年半も腫瘍の再発は認められていない. その他に原発性子宮細網肉腫の1例がそれぞれ Welch および Hellwig,⁵ Volpe,⁷ Toth および Csömör,¹⁰ Prive および Dumont,¹¹ ならびに Rotondi¹² によって報告された.

Nasiell¹⁵ は子宮頸管の Hodgkin 病の1女性例について報告したが, 悪性腫瘍の最初の兆候として陰分泌物塗抹標本の細胞学的検査に疑わしい結果が認められた. 原発性子宮 Hodgkin 病について別に三つの報告が Retikas,¹⁴ Anderson,¹⁶ ならびに Lauro および Giornelli¹⁷ によってなされた.

考 察

本報における症例は, いくつかの解剖学的所見によって, 子宮に原発した細網肉腫例であることを提示するもので

of several anatomic findings. The major tumor bulk was within the cervix, and extended directly into the adjacent parametrial and paracervical tissues. The tumor caused enlargement of the uterus by diffuse infiltration into the cervical and uterine wall, so that the fundus approached the pelvic brim. Only regional lymph node chains and the lower para-aortic nodes were involved. Beyond this, only two microscopic foci were seen distally.

The large bulk of the uterine tumor associated with only two microscopic distant metastases suggests this tumor was slow in metastasizing. The amount of secretory fluid which accumulated in the dilated endometrial cavity indicates that the obstruction of the cervical canal by uterine tumor must have been present for some time as the endometrial glands of a 90-year-old woman would be expected to have minimal activity. Histologically the endometrium was atrophic, so that there must have been little secretory activity. The immediate cause of death for this patient was bilateral ureteral obstruction resulting from the extension of the uterine tumor with direct involvement of the urinary bladder and ureteral-vesicle junctions. Malignant lymphomas do not generally cause death by bilateral ureteral obstruction with resultant uremia as happened to this patient. However, other cervical malignancies such as epidermoid carcinoma commonly spread to involve the ureters in a manner similar to the tumor in our patient. This suggests that a cervical origin disposes to ureteral obstruction as a consequence of local tumor spread.

Lathrop⁹ reviewed metastatic lymphomatous involvement of the female genital organs in 59 women coming to autopsy and in whom the genital tract was intact. The cervix was secondarily involved in 17% of these women and this was considerably less than the most commonly involved site, the ovary (79%).

As most of the reported instances of primary cervical or uterine lymphoma have been diagnosed by incisional biopsy, some doubt will always remain as to the exact extent of tumor involvement. This is true even for treated patients who are free of recurrence after long periods of time because the radiation therapy field properly includes an area extending beyond the apparent tumor. Therefore radiation treatment may destroy local spread not appreciated clinically.

Special care must be taken when interpreting cervical biopsies from pregnant women as it has been reported¹⁸ that certain forms of decidual transformation of cervical stroma may mimic reticulum cell sarcoma. The reason reticulum cell sarcomas predominate among the reported cases is not readily apparent.

ある。おもな腫瘍塊は子宮頸管部内にあって、直接に隣接の子宮旁結合組織および子宮頸管周囲組織に広がっていた。腫瘍は瀰漫性に子宮頸管壁および子宮壁に浸潤し子宮肥大をきたし、そのため子宮底部は骨盤入口に接近していた。領域リンパ節連系域および下部動脈周囲結節のみがおかされていた。このほかには、2個の顕微鏡的病巣が遠隔部に認められたのみであった。

子宮に大きい腫瘍塊があって、遠隔部に顕微鏡的転移巣が2個しか認められなかったことは、この腫瘍の転移が緩慢であることを示唆する。90歳の婦人の子宮内膜腺の活動はきわめて軽微であろうと考えられるので、拡張した子宮内膜腔に蓄積された分泌液の量から判断すると、子宮における腫瘍による子宮頸管閉塞はかなりの期間続いたにちがいないと思われる。子宮内膜は組織学的に萎縮していたので、分泌活動はほとんどなかったと考えられる。この症例の直接死因は、原発性子宮腫瘍の増大による両側尿管閉塞と膀胱および尿管・膀胱接合部を直接おかしていたためであった。悪性リンパ腫では、本症例のように両側尿管閉塞とその結果生ずる尿毒症を原因として死亡することは通常みられない。類表皮癌のような他の子宮頸管悪性腫瘍では、本症例のように尿管に広がることは珍しくない。これは子宮頸管部に発生する腫瘍が局部的に広がる結果、尿管閉塞が起こることを示唆する。

Lathrop⁹は、性器路に異常のない女性の59例の剖検例の性器における転移性リンパ腫性侵襲について検討した。これらの婦人の17%は子宮頸管部が二次的におかされていたが、二次的侵襲の最も多いところの卵巣(79%)に比べるとこれは著しく少ないものであった。

原発性子宮頸管または子宮リンパ腫の報告例の大部分は切開生検によって診断されたものであるので、腫瘍の正確な侵襲範囲については常に若干の疑いが残るであろう。このことは、治療を受けた後長期間再発を免れている患者についても言えることである。なぜならば、放射線療法では照射野は当然腫瘍があると思われる箇所を中心に相当な範囲に及ぶので臨床的に認められないような局部的侵襲も破壊される可能性がある。

妊婦から採取した子宮頸管組織片の判定にあたっては、子宮頸管間質部におけるある種の脱落膜変化は細網肉腫によく似ていると報告されている¹⁸ので、特に注意を要する。報告例中に細網肉腫の多い原因はあまり明白では

It is reported from Canada¹⁹ that when lymphomas are found as primary tumors in extranodal sites, 61% are reticulum cell sarcomas, 40% are lymphosarcomas, and 9% are Hodgkin's disease. However, lymphosarcoma is a much more common neoplasm in the geographical areas represented in most of the case reports, so that other factors being equal more equivalent proportions might be expected. In Japan, reticulum cell sarcoma has been found to be the predominant histological type of lymphoma.²⁰

One case report of a "reticulosarcoma" of the uterus²¹ was not included in this review because of significant doubt as to the nature of the neoplasm. The authors described the uterine tumor as originating from the perithelium of the uterine mucosa, an origin not consistent with the tumors under discussion.

Although uterine sarcomas as a group are the most lethal of all primary uterine tumors, the rare primary malignant lymphomas evidently have a more favorable prognosis especially following radiation therapy. Indeed, from the small number of reported cases, it appears that patients with uterine lymphomas may have a better survival rate than those with other extranodal lymphomas of similar histologic type. Presumably this is because clinical signs such as bleeding are manifest earlier, because the cervix and uterus are more readily available to examination and perhaps because pelvic tissues are a better target for roentgen therapy. In some of the reported cases however, the signs and symptoms were mild and the patients delayed in reporting to their physicians suggesting that lymphomas of the uterus are slow growing and slowly spreading tumors.

It appears from the small number of reports available that, although rare, primary malignant lymphomas of the uterus do occur. Apparently their prognosis is better than for other uterine sarcomas.

ない。カナダの報告¹⁹によると、リンパ腫が結節以外の部位に原発性腫瘍として発見される場合は、細網肉腫の61%、リンパ肉腫の40%そして Hodgkin 病の9%がこれに該当する。しかしながら、報告された症例の大部分の発生地域では、リンパ肉腫のほうが頻度が高いので、他の因子が等しければ、もっと同じような割り合いの頻度が期待されるはずである。日本では細網肉腫が組織学的に頻度の高いリンパ腫である。²⁰

今回の検討では、新生物の性質に有意な疑いがあるため子宮の「細網肉腫」と報告²¹された1症例は除外した。この報告者らは、その子宮腫瘍は子宮粘膜の外被から発生したと報告したが、この発生部位は本報で検討しているところの腫瘍とは異なるものである。

各種子宮肉腫は原発性子宮腫瘍の中で致死率の最も高いものであるが、このうち、まれに認められる原発性悪性リンパ腫の予後は他のものよりも良好で、放射線療法を受けたものでは特に佳良である。事実、報告されたこれら少数の症例からは、子宮リンパ腫患者の生存率は組織型が同じである結節外リンパ腫患者のそれよりも良好であるようである。これはおそらく子宮頸管および子宮の検診は容易に行なうことができ、出血のような臨床徴候が早期に認められることと、骨盤組織にはX線療法の実施が容易であることとのためであろう。しかしながら、症例の中には徴候や症状が軽微であったため、患者が医師の診察を求めるのが遅れたものもあった。これはリンパ腫の成長および進展が緩慢であることを示唆する。

これらの少数の報告からみると、子宮の原発性悪性リンパ腫はまれではあるけれども発生はしているようである。その予後は他の子宮肉腫よりは明らかに良好である。

REFERENCES

参考文献

1. WALTON LL: Lymphosarcoma of the uterus: Report of two cases. *Conn Med J* 17:819-21, 1953
2. JOHNSON CE, SOULE EH: Malignant lymphoma as a gynecologic problem. *Obstet Gynecol* 9:149-57, 1957
3. MOORES WG: Malignant lymphoma of the cervix. *Nova Scotia Med Bull* 44:72, 1965
4. EPPERSON JWW: Case of the reticulum cell variety of lymphosarcoma involving the female genitalia. *Western J Surg* 58:701-3, 1950
5. WELCH JW, HELLWIG CA: Reticulum cell sarcoma of the uterine cervix. *Obstet Gynecol* 22:293-4, 1963
6. VIEAUX JW, McGUIRE DE: Reticulum cell sarcoma of the cervix. *Am J Obstet Gynecol* 89:134-5, 1964

7. VOLPE D: Sulle neoplasie mesenchimali dell'utero (un caso di reticulosarcoma). *Riforma medica* 79:398-402, 1965
8. AARO LA, SYMMONDS RE, DOCKERTY MB: Sarcoma of the uterus. *Am J Obstet Gynecol* 94:101-9, 1966
9. LATHROP JC: Malignant pelvic lymphomas. *Obstet Gynecol* 30:137-45, 1967
10. TOTH von F, CSÖMÖR S: Primäres retikulosarkom des gebärmutterhalses. *Zbl Gynaek* 89:1510-13, 1967
11. PRIVE L, DUMONT P: Reticulo-sarcome primitif du col uterin. *Un Med Canada* 97:751-4, 1968
12. ROTONDI M: Reticulosarcoma del collo dell'utero (contributo anatomo-clinico). *Riv Obstet Ginecol* 24:274-90, 1969
13. FOA R, LEBREUIL G, ERNY R, DELTOMBE JP: Reticulosarcome a inflexion plasmocytaire du col uterin. *Arch Anat Pathol* 18: 213-8, 1970
14. RETIKAS DG: Hodgkin's sarcoma of the cervix. *Am J Obstet Gynecol* 80:1104-7, 1960
15. NASIELL M: Hodgkin's disease limited to the uterine cervix. *Acta Cytol* 8:16-8, 1964
16. ANDERSON GG: Hodgkin's disease of the uterine cervix. *Obstet Gynecol* 29:170-72, 1967
17. LAURO V, GIORNELLI FE: Linforgranuloma maligno a localizzazione genitale primaria. *Arch Obstet Ginec* 73:723-30, 1968
18. ARMENIA CS, SHAVER DN, MODISHER MW: Decidual transformation of the cervical stroma simulating reticulum cell sarcoma. *Am J Obstet Gynecol* 89:808-16, 1964
19. PETERS VM, HASSELBACK R, BROWN TC: The Natural History of the Lymphomas Related to the Clinical Classification. In *Proceeding of the International Conference on Leukemia-Lymphoma*. Philadelphia, Lea & Febiger, 1968. pp 357-71
20. ANDERSON RE, ISHIDA K, II Y, ISHIMARU T, NISHIYAMA H: Geographic aspects of malignant lymphoma and multiple myeloma. *Am J Pathol* 61:85-97, 1970
21. SCEBBA G, SCILLAMA G: Il reticulosarcoma dell'utero (Contributo anatomo-pathologico). *Excerpta Med (V)* v. 6, abstract 3037, 1963

REFERENCES

参考文献

1. WATSON LB: Lymphomas of the uterus. Report of two cases. *Can Med* 17:419-21, 1957
2. ANDERSON RE, ISHIDA K, II Y, ISHIMARU T, NISHIYAMA H: Geographic aspects of malignant lymphoma and multiple myeloma. *Am J Pathol* 61:85-97, 1970
3. WOODS WJ: Malignant lymphoma of the cervix. *New South Wales Med J* 44:21, 1969
4. PETERS VM, HASSELBACK R, BROWN TC: The Natural History of the Lymphomas Related to the Clinical Classification. In *Proceeding of the International Conference on Leukemia-Lymphoma*. Philadelphia, Lea & Febiger, 1968. pp 357-71
5. WATSON LB: Lymphomas of the uterus. Report of two cases. *Can Med* 17:419-21, 1957
6. ANDERSON RE, ISHIDA K, II Y, ISHIMARU T, NISHIYAMA H: Geographic aspects of malignant lymphoma and multiple myeloma. *Am J Pathol* 61:85-97, 1970
7. WOODS WJ: Malignant lymphoma of the cervix. *New South Wales Med J* 44:21, 1969
8. PETERS VM, HASSELBACK R, BROWN TC: The Natural History of the Lymphomas Related to the Clinical Classification. In *Proceeding of the International Conference on Leukemia-Lymphoma*. Philadelphia, Lea & Febiger, 1968. pp 357-71
9. WATSON LB: Lymphomas of the uterus. Report of two cases. *Can Med* 17:419-21, 1957
10. ANDERSON RE, ISHIDA K, II Y, ISHIMARU T, NISHIYAMA H: Geographic aspects of malignant lymphoma and multiple myeloma. *Am J Pathol* 61:85-97, 1970
11. WOODS WJ: Malignant lymphoma of the cervix. *New South Wales Med J* 44:21, 1969
12. PETERS VM, HASSELBACK R, BROWN TC: The Natural History of the Lymphomas Related to the Clinical Classification. In *Proceeding of the International Conference on Leukemia-Lymphoma*. Philadelphia, Lea & Febiger, 1968. pp 357-71