

## 後腹膜平滑筋肉腫の2例

平塚市民病院泌尿器科 (部長: 鈴木恵三)

石川 清仁, 堀場 優樹, 鈴木 恵三

平塚市民病院外科 (部長: 石川廣記)

石 川 廣 記

東邦大学医学部第二病理学教室

赤 坂 喜 清

### TWO CASE REPORTS OF RETROPERITONEAL LEIOMYOSARCOMA

Kiyohito Ishikawa, Masaki Horiba and Keizo Suzuki

*From the Department of Urology, Hiratsuka Municipal Hospital*

Hiroki Ishikawa

*From the Deptment of Surgery, Htratsuka Municipal Hospital*

Yoshikiyo Akasaka

*From the Department of Pathology, Toho University*

Two cases of retroperitoneal leiomyosarcoma are presented. The first case was in a 67-year-old female, whose chief complaint of right upper abdominal mass and dull pain. The tumor, 13×12×8 cm in size, developing in the retroperitoneum was removed with the right kidney and vena cava. The pathological diagnosis was reported as leiomyosarcoma.

The second case was in a 62-year-old male, whose complaint was left abdominal swelling, also with general fatigue. A large tumor mass, invading over all of the left flank organs, was palpable by physical examinations, from which the mass was far beyond surgical approach. Needle biopsy revealed the pathological finding of leiomyosarcoma. One month later, the patient died of cachexia. Review of the literatures for the retroperitoneal leiomyosarcoma, revealed only a few cases; 1.7%, of all leiomyosarcoma to date.

(Acta Urol. Jpn. 41: 603-607, 1995)

**Key words:** Leiomyosarcoma, Extensive radical operation, Retroperitoneal tumor

#### 緒 言

平滑筋肉腫は消化管壁, 血管壁等の構成筋線維である平滑筋細胞を発生母地とする悪性腫瘍であり, 全身いたるところに発生するが, その大半を消化管が占め, 後腹膜腔に発生することはきわめて稀である<sup>1)</sup>. われわれは後腹膜腔に発生した平滑筋肉腫を2例経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する.

#### 症 例

##### 症例 1

患者: 67歳, 女性

主訴: 右側腹部腫瘍と鈍痛

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 37歳, 虫垂炎・腹膜炎

現病歴: 1994年4月頃より右側腹部から背部にかけて重圧感を感じていたが放置していた. 9月初旬, 高血圧の精査目的で近医を受診したところ, 超音波検査で腹部腫瘍を指摘されたため当科来院となった.

入院時現症: 体格中等度, 栄養良好, 右側腹部から正中にかけて表面平滑弾性硬, 可動性に乏しい小児頭大の腫瘍を触知, 表在リンパ節は触知しない.

入院時検査成績: 末梢血, 血液生化学, 尿検査に異常なく, 副腎機能を中心とするホルモンの学的検索, お

よび腫瘍マーカーにも異常を認めなかった。

画像診断：腹部超音波検査では右腸腰筋と圧排された右腎の間に  $15 \times 12 \times 10$  cm の辺縁不整で、内部は全体がやや hypoechoic な腫瘍を認めた。IVP では右腎は外側下方に圧排され、僅かに neprogram が描出されるだけであった。腹部 CT 検査でも同様の腫瘍が同部位に認められ、下大静脈は腫瘍に押しつぶされたためか確認されなかった。下大静脈撮影検査では、腫瘍により圧排途絶した下大静脈と側副血行路として発達した腰静脈、奇静脈、半奇静脈が認められた (Fig. 1)。また、右下横隔動脈、右腎被膜動脈、右第 2, 3 腰動脈からの腫瘍血管を認めた。

以上の画像診断結果と日毎に腫瘍が増大することより後腹膜原発の悪性腫瘍と考え、10月4日に手術を施行した。

手術所見：腫瘍は術中写真 (Fig. 2) に示すように下大静脈を後方より押し上げるような形で存在した。また、血管壁への直接浸潤のため癒着がひどく、また圧迫による狭窄のため血流は極端に減少していた。下肢の浮腫を認めないことより側副血行路が還流路となっていると判断し、下大静脈を右腎静脈の上下で結紮切断し、腫瘍と右腎を合併切除した。

肉眼所見：腫瘍は  $13 \times 12 \times 8$  cm 大で、ほぼ全周性に薄い線維被膜を有する、境界明瞭な弾性硬の腫瘤であった。腫瘍の断面は、黄白色充実性で、分葉状を呈しており、腫瘍のほぼ中央には出血壊死巣が見られた (Fig. 3)。

組織学的所見：HE 染色像では、紡錘形の腫瘍細胞が束をなしつつ交錯して充実性に増殖しており、腫瘍間質は比較的血管に富み、所々に線維化や浮腫状変性が巣状に認められた (Fig. 4-1)。腫瘍細胞は細胞境界が明瞭な好酸性胞体を有しており、核の大小不同が著明で、核異型が高度であった。巨大な核や多核を有する、多形性に富む細胞も散見された (Fig. 4-2)。核分裂像も多数 (400倍で每視野 2~4個) 認められた。免疫組織化学的には、腫瘍細胞は胞体がアクチン陽性であった (Fig. 4-3, S-100 蛋白陰性)。以上より、病理組織学的に平滑筋肉腫と診断された。なお腫瘍は下大静脈との癒着部で静脈壁に直接浸潤していた。

術後経過：手術に根治性がなく、また有効な化学療法、放射線療法も検索しえなかったため、11月2日退院とした。術後の腹部 CT 検査にて大動脈の右側の接し  $6 \times 6 \times 3$  cm 大の腫瘍を認めているため、現在慎重に経過観察中である。

#### 症例 2

患者：62歳、男性

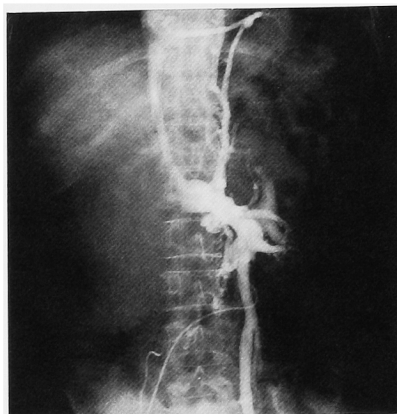


Fig. 1. (Patient 1) Venography showed the obstruction of IVC compressed by tumor.



Fig. 2. (Patient 1) Operative finding (IVC and right renal vein were pushed up by tumor).

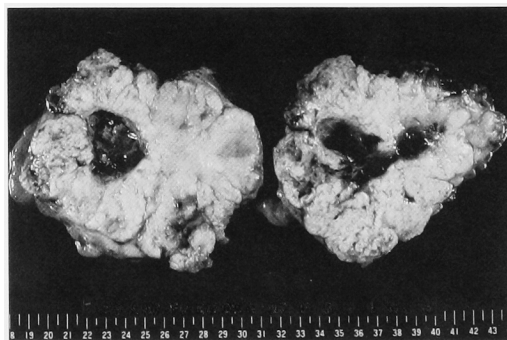
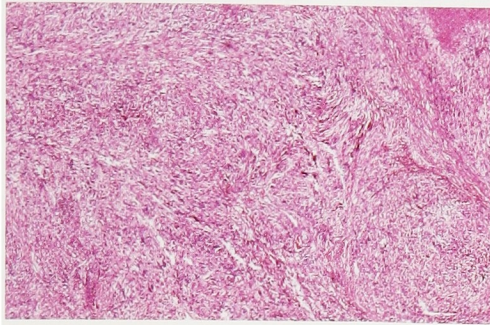


Fig. 3. (Patient 1) Macroscopic finding (the tumor was  $13 \times 12 \times 8$  cm in size, with central necrosis).

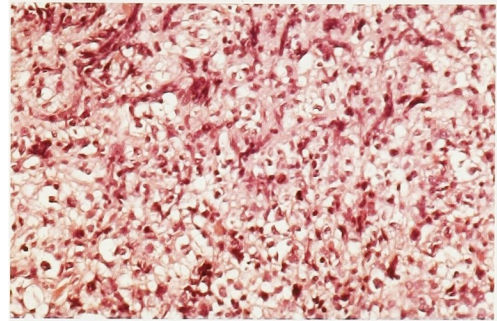
主訴：全身倦怠感、左側腹部腫瘍、腹部膨満感

家族歴：特記すべきことなし

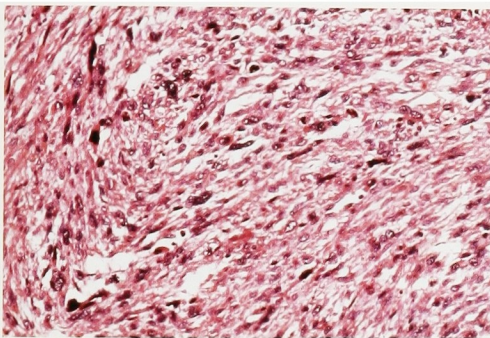
既往歴：50歳、アルコール性肝炎、肝硬変、肝機能不全



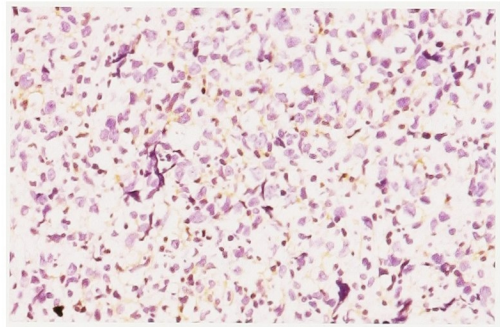
4-1:HE ×20



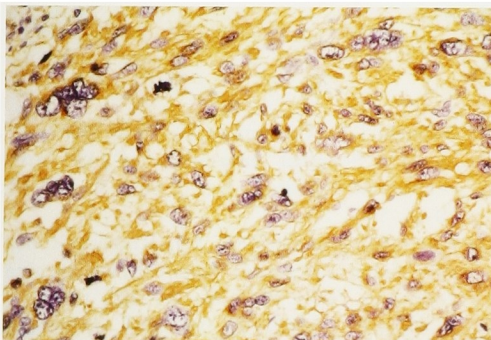
5-1:HE ×200



4-2:HE ×200



5-2:actin ×200



4-3:actin ×200

Fig. 4. (Patient 1) Histological finding showed leiomyosarcoma.

現病歴：1994年10月6日全身倦怠感を主訴に近医を受診。黄疸を指摘され、腹部超音波検査で左腎腫瘍と腹水を認めたため、10月13日当科を紹介され、来院した。

入院時現症：体格瘦身，栄養不良，黄疸腹水貯留あり，右側腹部に肝臓触知，左側腹部から正中を越えて表面平滑弾性硬，可動性のない腫瘤を触知する。また表在リンパ節も触知した。

入院時検査成績：末梢血で赤血球  $1.53 \times 10^6 / \text{mm}^3$ ,

Fig. 5. (Patient 2) Histological finding showed leiomyosarcoma.

ヘモグロビン 6.2 g/dl, ヘマトクリット 17.2%, 血液生化学で総ビリルビン 5.0 mg/dl, 直接ビリルビン 1.8 mg/dl, GOT 37 IU/l, LDH 892 IU/l, TTT 11.3 KU, ZTT 17.2 KU, BUN 24 mg/dl, Cr 1.4 mg/dl, 尿酸 10.6 mg/dl, 血液凝固検査でトロンボテスト 54%, ヘパラスチンテスト 65%, プロトロンビン 49%, AT-III 63%, FDP 20~40  $\mu\text{g}/\text{ml}$  と異常で、尿検査、腫瘍マーカーは正常であった。

画像診断：腹部超音波検査では左腎部に  $18 \times 15 \times 13$  cm 大の腫瘍と水腎症，さらに大動脈周囲のリンパ節腫大，肝硬変，脾腫，腹水貯留が指摘された。腹部CT検査では上記所見に加えて，腫瘍は後腹膜腫瘍であり，大動脈，腸腰筋に直接浸潤があることが判明した。

腫瘍がすでに大動脈まで浸潤しており，合併切除不可能であることと高度の肝硬変による全身状態不良を理由に手術は断念し，組織学的診断の目的で10月25日，経皮的針生検術および腹水穿刺術を施行した。

経皮的針生検材料の組織学的所見：HE染色では類円形，卵円形の腫瘍組織の密な増殖からなり，その

胞体は割合明瞭であった。一部の細胞の胞体は好酸性であり、部分的に空胞状変化がみられた。腫瘍の一部ではその細胞が多核形、短紡錘形となり核の大小不同や多核の目立つ所見が観察された (Fig. 5-1)。核分裂像も多数 (400倍で每視野に2~4個) 認められた。免疫組織化学的に腫瘍細胞はアクチンの陽性像がえられた (Fig. 5-2)。ただし S-100 蛋白は陰性であった。以上より病理組織学的に平滑筋肉腫と診断された。また、腹水細胞診の結果も class V であった。

その後の全身状態は日毎に悪化して11月13日に死亡した。

## 考 察

後腹膜腫瘍は多くが悪性腫瘍であり、そのうち平滑筋肉腫の占める割合は8.5%から23%であるといわれている<sup>2)</sup>。一方、平滑筋肉腫の発生部位についてみると胃が最も多く、続いて大腸、小腸の順となり消化管のみで約70%を占めている<sup>1)</sup>。また泌尿器科領域でも稀ながら発生しており、宮城<sup>3)</sup>によると膀胱、腎の順に多くみられるが、後腹膜発生は1.7%と稀な疾患といえる。本邦ではわれわれが検索しえた範囲では現在までに95例が報告されている。

好発年齢は40~60歳代といえるが、いずれの年齢にも認められ、特に雨海<sup>4)</sup>は小児の後腹膜原発平滑筋肉腫を7例集計して、治療の困難さと予後の悪さを強調している。男女比は1対2<sup>5)</sup>もしくは2対3<sup>7)</sup>と女性に多く、この傾向は後腹膜腔および腎に発生する平滑筋肉腫に特徴的とされ、消化管発生には性差がないといわれている<sup>8)</sup>。この点に関して螺良<sup>9)</sup>は、平滑筋腫が性成熟期に多く発生すること、女性ホルモンが平滑筋の核分裂促進作用を有するなどから、平滑筋腫の発生に女性ホルモンの影響が強く、発生学的に子宮に近い腎や後腹膜は、女性ホルモンの作用を受けやすいのではないかと推測している。

臨床症状としては腫瘤触知、疼痛および全身倦怠など特徴を欠き、むしろ無症状のまま進行して超音波検査などのスクリーニングで発見されることが多い。これは他の後腹膜腫瘍と同様に腫瘍が巨大化するまで症状が発現しないのが原因である。

診断には腹部超音波検査、CT、血管造影検査が有用である。最近では超音波検査の普及で偶然発見される症例も散見されるようになった<sup>9)</sup>。また、腹部CTは腫瘍の局在診断や隣接臓器との関連を明らかにし、治療方針の決定に有用である。血管造影では多くの場合、hypervascular で血管新生や pooling を認める。また、腰動脈からの血管支配が後腹膜原発を示唆する重

要な所見である<sup>9)</sup>。しかしながら組織像の推定は不可能であり、確定診断は病理組織学的検索によらねばならない。

治療は外科的完全切除が唯一の根治療法であるが、早期診断が困難なことが多く、切除可能症例は60%に満たない。しかしながら化学療法や放射線療法の有効性が期待できない現在では、隣接臓器への浸潤症例でも他臓器合併切除を含む積極的な手術が行われ、切除率も向上している<sup>9)</sup>。また、局所再発症例では再開腹手術も積極的に行われている<sup>9)</sup>。

予後は、その根治手術の困難さに加え、高頻度に血行性、リンパ行性に転移し<sup>10)</sup>、局所再発も多いため、きわめて悪い、Ranchod<sup>11)</sup>は、後腹膜原発平滑筋肉腫の2年生存率を16%としている。また、予後不良因子として Wile<sup>10)</sup>らは、腫瘍径が5cm以上、mitosisが400倍光顕上10視野に10個以上あることを挙げているが、最大の予後因子は根治的手術ができたか否かである。本症例2は全身状態不良でかつ肝不全も合併していたことより根治的拡大手術は断念せざるをえなかった。そのため来院1カ月後に癌死という残念な経過を辿ってしまったが、このような症例を今後出さないためにも人間ドックを中心とするスクリーニング検査の普及と早期治療に心掛けなければならないと痛感した。

## 文 献

- 1) Salvadori B, Cusumano F, Delle donne V, et al.: Surgical treatment of 43 retroperitoneal sarcoma. *Eur J Surg Oncol* 12: 29-33, 1986
- 2) Baker CC and Gusberg RJ: Retroperitoneal soft tissue sarcomas: A continuing surgical challenge. *Clin Med* 50: 217-220, 1986
- 3) 宮城徹三郎, 大滝三千雄, 林 守源, ほか: 後腹膜平滑筋肉腫の1例. *泌尿紀要* 28: 1141-1147, 1982
- 4) 雨海照祥, 大川治夫, 金子道夫, ほか: 後腹膜原発巨大平滑筋肉腫の治療経験—腹部大動脈を取り囲み下大静脈に腫瘍栓を認めた1例—. *日小児外会誌* 29: 1317-1322, 1993
- 5) Eninger FM: "The soft Tissue Tumors" *Leiomyosarcoma*. (Mosby cv): 298-315, 1983
- 6) Shmookler BM and Lauer DH: Retroperitoneal Leiomyosarcoma. *Am J Surg Pathol* 7: 269-280, 1983
- 7) Hashimoto H, Tsuneyoshi M, Enjoji M, et al.: Malignant smooth muscle tumors of retroperitoneum and mesentery. *J Surg Oncol* 28: 177-186, 1985
- 8) 螺良義彦, 高島文男: 腎臓平滑筋腫の1例. 大阪

- 大医誌 5: 105-106, 1952
- 9) 滝川 浩, 藤田次郎, 沼田 明, ほか: 下大静脈切除を行なった後腹膜平滑筋肉腫の1例. 西日泌尿 48: 171-174, 1986
- 10) Wile AG, Evans HL and Romsdahl MM: Leiomyosarcoma of soft tissue: A clinico-pathologic study. Cancer 48: 1222-1232, 1981
- 11) Ranchod M and Kempson RL. Smooth muscle tumors of gastrointestinal tract and retroperitoneum. Cancer 39: 255-262, 1977
- (Received on February 22, 1995)  
(Accepted on May 1, 1995)