

腎血管筋脂肪腫の1例

—本邦429例の統計的考察—

名古屋市立東市民病院泌尿器科 (副院長: 山崎 巖)

林 祐太郎, 寺尾 暎治, 山崎 巖

ANGIOMYOLIPOMA OF THE KIDNEY: A CASE REPORT AND A STATISTICAL STUDY OF 429 CASES IN JAPAN

Yutaro HAYASHI, Eiji TERAO and Iwao YAMASAKI

From the Department of Urology, Higashi Municipal Hospital

A 40-year-old housewife was found to have a renal mass on her left side through an ultrasonogram at the hospital during a medical check up. The patient had a dull pain in her left flank intermittently for three years. She had no personal or family history of stigmas of tuberous sclerosis. The mass showed a high echogenicity on the ultrasonogram and a low density (-84HU) on the CT scan. Preoperative diagnosis was reported as renal angiomyolipoma and an enucleation of the tumor was performed with CUSA.

A statistical study was done on data taken from 429 cases of renal angiomyolipoma in the Japanese literature, including our case. The male to female ratio was 1 to 2.9. Thirty three percent of the cases were associated with tuberous sclerosis. The ratio of bilateral cases to unilateral ones was 1:4. The main clinical signs were abdominal pain, abdominal mass and gross hematuria. Nephrectomy was done in 71.0% of the cases, partial nephrectomy and enucleation in 13.7% and embolization in 2.2%. Through the composition of the CT scan and the ultrasonogram, preoperative diagnosis has become possible in many cases, so recently the ratio of nephrectomy has been decreasing. We think partial nephrectomy and enucleation compose the most effective therapy for renal angiomyolipoma.

(Acta Urol. Jpn. 35: 1755-1759, 1989)

Key words: Renal angiomyolipoma, Statistical study

緒 言

腎血管筋脂肪腫は血管, 平滑筋, 脂肪組織によって構成される良性の腎腫瘍であり, 従来から結節性硬化症と合併することの多い疾患とされてきた。近年CT, 超音波検査 (US) の組み合わせにより, 腎細胞癌との鑑別が可能な症例が増加し, 腎保存的治療が行われるようになってきた。

今回, 著者は術前に腎血管筋脂肪腫と診断し, 腫瘍核出術を施行した1例を経験したので報告するとともに, 本邦報告429例の統計的考察を行った。

症 例

患者: 40歳, 女性

初診: 1988年3月29日

主訴: 左腎腫瘍の精査

家族歴: 特記すべきことはない

既往歴: てんかん発作の既往はない

現病歴: 1988年2月人間ドックの腹部超音波検査にて左腎腫瘍を指摘され, 当科に紹介され入院となった。患者は3年程前から間歇的に出現する左季肋部痛を経験しており, 近医にて心肥大によるものとして治療を受けていた。

入院時現症: 身長 154.5 cm, 体重 56 kg, 血圧 136/74 mmHg, 脈拍77/分, 整。体温 35.4°C。胸部に理学的に異常なし。腹部は平坦で軟, 肝, 脾, 両側腎, 腫瘍を触れない。顔面脂腺腫なし。知能低下なし。

入院時検査所見: 末梢血; RBC $366 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 11.7 g/dl, Ht 35.1%, 白血球 $4,400/\text{mm}^3$, 血小板 $26.0 \times 10^4/\text{mm}^3$ 。血液生化学; 総蛋白 7.0 g/dl, アルブミン 4.3 g/dl, GOT 18 KU, GPT 21 KU, AIP 111 IU/l, LDH 256 IU/l, BUN 12.9 mg/dl, クレアチニン 0.6 mg/dl, 電解質異常なし。血沈; 1時間値 4 mm, 2時間値 13 mm。CRP (-)。検尿; 異常な

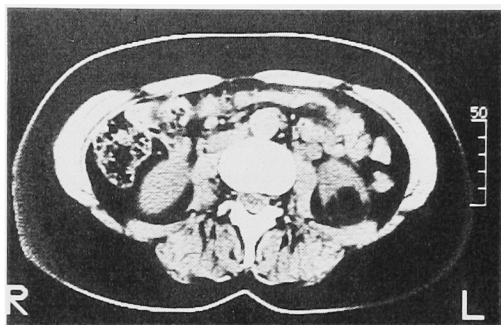


Fig. 1

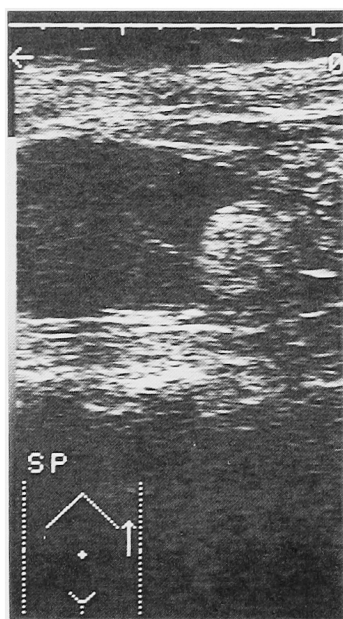


Fig. 2

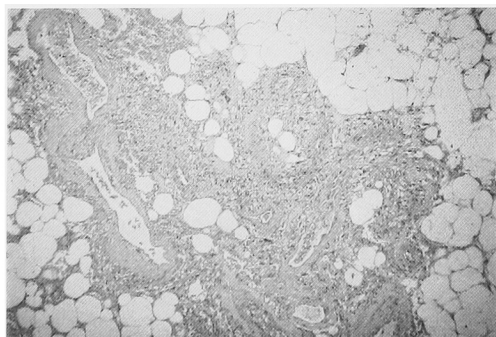


Fig. 3

し。尿細胞診；class I。心電図，胸部 XP：異常なし。

画像診断：経静脈性腎盂造影；異常なし。腹部 CT；左腎下極に周囲組織と境界明瞭な low density (-84 HU) を示す径約 3 cm の腫瘤を認めた (Fig. 1)。腹部 US；左腎下極に径約 3 cm の high echoic mass を認めた (Fig. 2)。腎血管造影；左腎下極に軽度血管増生をともなう radiolucent area の存在を認めた。ただ微小動脈瘤様所見や玉ねぎの剖面様所見は認めなかった。

以上の所見より，本症例は結節性硬化症を合併しない腎血管筋脂肪腫と診断した。以前からあった左季肋部痛は本疾患によるものと判断し，入院後も疼痛の出現をみたため，1988年5月12日，手術を施行した。

手術所見：左腰部斜切開にて後腹膜腔に達した。比較的容易に剝離は可能であり，左腎下極に軽度突出する拇指頭大の腫瘤を認めた。念のため腎茎部を処理した後，CUSA を用いて腫瘍核出術を施行した。出力 30%，吸引圧 250 mmHg で切開を始めたが，十分な切開ができなかったため，出力を 50～60% にあげたところ，腎実質と腫瘍との間は容易に切開できたが，腫瘍への血管を露出する際に血管を損傷してしまった。術中出血量は 235 g であった。

病理所見：切除標本は 25×15×10 mm，3 g であった。組織学的に，脂肪細胞の増殖を主体とし，その一部に focal な血管や平滑筋の増生がみられ，血管筋脂肪腫と病理診断された (Fig. 3)。

術後経過：術後経過は順調で，術後 29 日目に退院し，術後 7 カ月が経過した現在，術前に認められた左季肋部痛は消失している。

考 察

今回，著者らは高士¹⁾ (1984年) の集計した腎血管筋脂肪腫 (angiomyolipoma, 以下 AML と略す) 194例に1988年8月までに文献上調べた234例と自験例を加え，本邦429例の統計的考察を行った。

男女比は高士¹⁾ の報告と同様に 1:2.9 と女性に多く，その比率も全く同じであった。年齢分布は男女とも 30 歳代にピークを呈したが，最近 5 年間は 30 歳代か 60 歳代まで大差なく分布する傾向がみられた (Table 1)。

結節性硬化症 (tuberous sclerosis, 以下 TS と略す) との合併は，その記載の明らかな 303 例中 100 例 (33.0%) に認められた。TS との合併は男子で 50.6%，女子で 28.6% と，男子に高い頻度で認められた (Table 2)。

左右差は 4/5 の割合でやや右に多く発生する傾向がみられた。laterality について記載の明らかな 384

Table 1. Age and sex incidence

Age	Male	Female	Unknown	Total
10~19	5	11	0	16
20~29	15	36	0	51
30~39	28	87	0	115
40~49	19	63	0	82
50~59	17	48	0	65
60~69	13	34	0	47
70~79	8	16	0	24
Unknown	1	11	17	29
Total	106	306	17	429

Table 2. Association with tuberous sclerosis

	TS⊕	TS⊖	Unknown	Total
Male	37	36	33	106
Female	62	155	89	306
Unkown	1	12	4	17
Total	100	203	126	429

TS : tuberous sclerosis

Table 3. Laterality of the tumor

Side	TS⊕	TS⊖	Unknown	Total
Right	23	90	55	168
Left	20	72	43	135
Bilateral	51	19	11	81
Unkown	6	22	17	45
Total	100	203	126	429

TS : tuberous sclerosis

例中, 腫瘍が両側に認められたのは81例(21.1%)であった。両側例で, TS の合併の有無の明らかな70例中, TS と合併した症例は51例(72.9%)であり, 片側例の TS 合併例(右:20.4%, 左:21.7%)に比べ合併頻度は高かった(Table 3)。

TS と合併した症例のうち, 片側例(46例)と両側例(51例)とは症例数としては大差ない。ただ TS と合併した片側例でも, 治療後あるいは経過観察中に対側腎に AML が出現した症例もあり, TS が合併した場合, たとえその段階で AML が片側腎にのみ認められたとしても, 対側腎にも発生する可能性があることを考慮して治療方針をたてる必要があると思われる。

臨床症状として, 記載の明らかな384例中, 疼痛229例(59.6%), 腫瘍100例(26.0%), 血尿62例(16.1%)

Table 4. Clinical sign

疼 痛	229	(59.6%)
腫 瘍	100	(26.0%)
血 尿	62	(16.1%)
発 熱	53	(13.8%)
シ ョ ッ ク	24	(6.3%)
悪 心 嘔 吐	13	(3.4%)
腹 部 膨 満	8	(2.1%)
高 血 圧	6	(1.6%)
蛋 白 尿	4	(1.0%)
貧 血	4	(1.0%)
下 痢	3	(0.8%)
全 身 倦 怠 感	2	(0.5%)
浮 腫	1	(0.3%)
心 窩 部 不 快	1	(0.3%)
易 疲 勞 感	1	(0.3%)
無 症 状	46	(12.0%)

Table 5. Treatment

腎摘(片側)	280
(両側)	2
腎摘+対側部切	5
腎摘+対側核出	1
腎摘+対側生検	4
部切	38
部切+対側生検	1
部切+対側核出	1
部切+対側自家腎移植	1
核出	14
生検	28
塞栓	8
生検+塞栓	1
Exploratory treatment	1
保存的治療	25
不詳	19
計	429

%)と腎細胞癌の三大徴候が上位を占め, 以下発熱53例(13.8%), ショック24例(6.3%)などであった。無症状の症例も46例(18.0%)と少なくない(Table 4)。

腎 AML は, TS と合併した場合には術前診断は容易とされていたが, TS と合併しない場合, 従来腎細胞癌との鑑別は困難であった。CT, US が普及するまでは, その診断には腎血管造影が有用とされていた。腎 AML の血管造影における特徴として①新生血管②微小動脈瘤の像③静脈相で玉ねぎの割面様の像④動静脈瘻がないこと⑤腫瘍の脂肪組織成分に一致する実質相での透亮像²⁻⁵⁾などがあげられ, これら特徴的な所見のみられる症例では腎細胞癌と鑑別しえるとされた。しかし Clark⁶⁾は腎 AML 26例について検討し, ②および③の所見はわずかに4例であったと報告している。

CT, US は従来の検査法に比べて脂肪組織の同定

が正確であり、腎 AML と腎細胞癌の鑑別に有用な検査法である。

超音波検査では、腎 AML はその脂肪成分の存在により hyperechoic な US 像を呈すること⁷⁻¹⁰が多いといわれる。US 上、腎に mass が認められた場合、mass の echo level が低いと腎細胞癌、高いと腎 AML の可能性が高い¹¹とされるが、壊死部や血管新生の著しい部位は hyperechoic な像としてとらえられ¹²、腎細胞癌のなかにも稀に hyperechoic なものが存在する場合がある⁷ので、high echogenecity のみで腎 AML と診断をくだすことはできないと思われる。

腎 AML の CT 上の特徴は、その脂肪成分に一致してマイナスの吸収値をとることである。CT 上、脂肪組織—60 HU、筋組織 50~60 HU、腎細胞癌 30~50 HU、壊死組織—10~20 HU の吸収値を示す¹³といわれており、腎 AML と脂肪成分を含まない腎細胞癌との鑑別は可能とされる。しかし①腫瘍を構成する脂肪成分が少ない場合、②出血や壊死によって腫瘍が修飾された場合、③腫瘍が小さい場合には腎 AML と診断することは容易ではない¹⁴とされ、現時点では腎摘出術を行わざるをえないようである。また腎 AML と同様に脂肪成分を有する脂肪腫や脂肪肉腫との鑑別も困難である¹⁵といわれる。特に分化型の脂肪肉腫と AML との鑑別は CT では困難であり、脂肪肉腫はその血管像に乏しいことから、両者の鑑別には血管造影が有用¹⁶とされる。

CT および US の画像所見を組み合わせることにより、腎 AML の診断は従来より正確になされるようになってきた。さらに最近新しい画像診断法として MRI が注目されており、鳥居ら¹⁶は自験例 5 例の腎 AML のうち 4 例は MRI で診断可能であったと報

告している。7 例は出血、壊死のために腎細胞癌と診断されたが、MRI の分解能が向上すれば、非典型的な腎 AML も診断可能になるであろうと述べ、MRI は矢状断がえられることや放射線の被爆がないため頻回の撮影が可能であり、経過観察に有用であると報告している。

次に腎 AML に対する治療法について検討した。治療法として、記載の明らかな 410 例のうち 292 例 (71.2%) に腎摘出術、56 例 (13.7%) に腎部分切除術あるいは腫瘍核出術、9 例 (2.2%) に腎動脈塞栓術 (塞栓術施行後に手術治療を行った症例は含めず、塞栓術のみで治療された症例を集計した) が行われた (Table 6)。腎摘出術が行われた割合を年度ごとにグラフに示すと Fig. 4 のようになった。1984 年までは 79.2% (246 例中 195 例) であったのに対し、1985 年以降は 59.1% (164 例中 97 例) に減少している。殊に 1988 年 (8 月まで) は 36.8% (26 例中 7 例) と 1984 年以前の半分以下の割合になっている。

腎 AML が術前に腎細胞癌と鑑別することが困難であった時代には治療法として腎摘出術が行われざるをえなかったが、CT、US の普及により、腎 AML の多くの症例で画像診断が可能になってきたため、治

Table 6. Oesterling の提唱した治療指針¹⁸⁾

	Tumor Size (cm)	
	<4	≥4
症状 ⊖	1年毎に CT or US	6ヵ月毎に CT or US
症状 ⊕	症状が続けば 塞栓術 腎部分切除術 腫瘍核出術	塞栓術 腎部分切除術 腫瘍核出術
	症状が消失すれば 6ヵ月毎に CT or US	

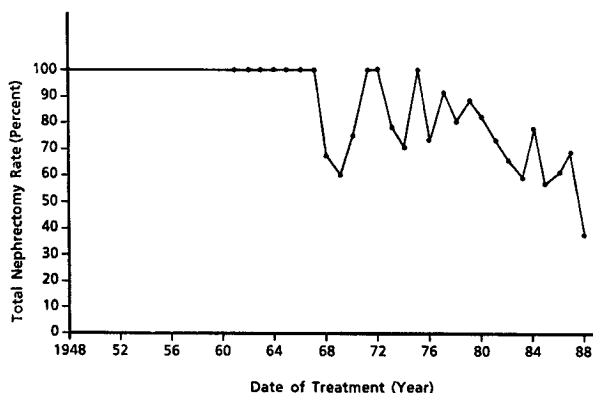


Fig. 4

療指針が求められるようになった。1976年に Walker¹⁷⁾ が腎摘出術をできるだけ避ける治療指針を示した。10年後の1986年に Oesterling¹⁸⁾ は症状の有無と腫瘍の大きさをもとに治療指針 (Table 7) を作成し, 治療法として腎保存的手術あるいは腎動脈塞栓術の有用性を主張するとともに, 自験例17例中無症候性の9例を3年から9年の間無治療で経過観察し, 9例とも症状の出現および腫瘍の大きさの変化はなかったことをあげ, 無症候性の腎 AML に対して CT, US により経過観察を行うことの重要性を述べている。

今後腎保存的治療を行う際, 腎保存的手術を行うべきか腎動脈塞栓術を行うべきかの選択が問題になると思われる。本邦429例のうち腎動脈塞栓術のみで治療されたのは9例であったが, このうち複数回塞栓術をうけたもの, 無効であったため腎動脈の本幹を永続塞栓したもの, 塞栓術後死亡したものがそれぞれ1例づつあった。このほかに塞栓術を施行したものの効果がえられず腎摘出術が行われた症例が3例あった。一方腎部分切除術, 腫瘍核出術が行われた症例のうち, 後に再発をきたしたという報告はみられず, 現時点では腎動脈塞栓術よりは腎保存的手術が行われるべきであると思われる。

結 語

①左腎に発生した腎血管筋脂肪腫の1例を報告した。

②1988年8月までの本邦報告例429例の統計的考察を行った。

③腎血管筋脂肪腫の診断には CT, US は不可欠と思われた。

④腎血管筋脂肪腫の治療法として腎保存的治療, 特に腎部分切除術や腫瘍核出術が現時点では最も有効と思われた。

本論文の要旨は第161回日本泌尿器科学会東海地方会(1988年9月)にて報告した。

文 献

- 1) 高士宗久, 村瀬達良, 山本雅憲, 傍島 健, 三宅弘治, 大竹 浩: 腎血管筋脂肪腫の3例—本邦194例の統計—。泌尿紀要 30: 65-75, 1984
- 2) Becker JA, Kinkhabwala M, Pollack H and Bosniak M: Angiomyolipoma of the kidney. Acta Radiol Diag 14: 561-568, 1973
- 3) 西口弘恭, 村上晃一, 前田知穂, 山本昭郎, 宮崎忠顕, 前良康男, 玉利公正, 白方秀二, 児玉正智: 腎過誤腫の一例。臨放 21: 913-918, 1976
- 4) 赤星寛次, 駕海良彦, 川波 喬, 池田 純, 平田弘, 浜田忠雄: 腎 angiomyolipoma の1例—とくに血管造影像について。臨放 21: 363-369, 1976
- 5) Silbiger ML and Peterson CC: Renal angiomyolipoma: it's distinctive angiographic characteristics. J Urol 106: 363-365, 1971
- 6) Clark RE and Palubinskas AJ: The angiographic spectrum of renal hamartoma. A JR 114: 715-721, 1972
- 7) Hartman DS, Goldman SM, Friedman AC, Davis CJ Jr, Madewell JE and Sherman JL: Angiomyolipoma: ultrasonic-pathologic correlation. Radiology 139: 451-458, 1981
- 8) Bosniak MA: Angiomyolipoma (hamartoma) of the kidney: a preoperative diagnosis is possible in virtually every case. Urol Radiol 3: 135-142, 1981
- 9) Bret PM, Bretagnole M, Gaillard D, Plauchu H, Labadie M, Lapray JF, Roullaud Y and Cooperberg P: Small, asymptomatic angiomyolipomas of the kidney. Radiology 154: 7-10, 1985
- 10) 細川尚三, 井原英有, 石橋道男: 腎部分切除術を施行した腎血管筋脂肪腫の1例—腎血管筋脂肪腫の術前診断における CT の有用性—。西日泌尿 45: 1091-1094, 1983
- 11) 伊藤直人, G.R. セレスタ, 中村隆幸, 市川靖二, 松田 稔: 腎部分切除術を施行した腎血管筋脂肪腫の1例—術前診断における超音波検査, CT scan の有用性—。泌尿紀要 33: 743-746, 1987
- 12) Lee TG, Henderson SC, Freeny PC, Raskin MM, Benson EP and Pearse HD: Ultrasound findings of renal angiomyolipoma. J Clin Ultrasound 6: 150, 1978
- 13) Sagel SS, Stanley RJ, Levitt RG and Geisse G: Computed tomography of the kidney. Radiology 124: 359-370, 1977
- 14) Sherman JL, Hartman DS, Friedman AC, Madewell JE, Davis CJ and Goldman SM: Angiomyolipoma; computed tomographic pathologic correlation of 17 cases. AJR 137: 1221-1226, 1981
- 15) Stephens JL, Sheedy PF II, Hattery RR and Williamson Jr B: Diagnosis and evaluation of retroperitoneal tumors by computed tomography. AJR 129: 395-402, 1977
- 16) 鳥居伸一郎, 町田豊平, 増田富士男, 大石幸彦: MRI による腎血管筋脂肪腫 (AML) の診断。日泌尿会誌 77: 554-559, 1986
- 17) Walker DE: Angiomyolipoma; diagnosis and treatment. J Urol 116: 712-714, 1976
- 18) Oesterling JE, Fishman EK, Goldman SM and Mqrshall FF: The management of renal angiomyolipoma. J Urol 235: 1121-1124, 1986

(1989年1月11日受付)