

## 多房性嚢胞状腎細胞癌の2例

三重大学医学部泌尿器科学教室（主任：川村寿一教授）

桜井 正樹, 杉村 芳樹, 佐谷 博之, 亀田 晃司  
栗本 勝弘, 大西 毅尚, 林 宣男, 有馬 公伸  
栃木 宏水, 川村 寿一

### MULTILOCLULAR CYSTIC RENAL CELL CARCINOMA : A REPORT OF TWO CASES

Masaki Sakurai, Yoshiki Sugimura, Hiroyuki Satani,  
Kouji Kameda, Katsuhiko Kurimoto, Yoshinao Oonishi,  
Norio Hayashi, Kiminobu Arima, Hiromi Tochigi  
and Juichi Kawamura

*From the Department of Urology, Mie University School of Medicine*

Two cases of multilocular cystic renal cell carcinomas in a 48-year-old man and in a 41-year-old woman are reported. Radical nephrectomy was performed in both cases. Both histologic diagnoses were multilocular cystic renal cell carcinoma, clear cell subtype, grade 1. We had some difficulty in diagnosing the latter case with multilocular cystic mass which had smooth, glistening lining and contained clear-yellow fluid. Microscopical examination of the permanent sections revealed that the cysts were lined by a cuboidal or flattened epithelium, but no tumor cells. However, laminar growth of renal cell carcinoma of the clear cell type was present in several areas in the septa, and a few residual tumor cells were found in the hyalinized septa. When renal cell carcinoma is present in only a part of the multilocular cystic renal mass, it should be diagnosed as multilocular cystic renal cell carcinoma. The literature was surveyed.

(Acta Urol. Jpn. 39: 45-49, 1993)

**Key words:** Multilocular cystic renal cell carcinoma

### 緒 言 症 例

多房性嚢胞状腎細胞癌は腎細胞癌の一種である。かつてはかなりめずらしいものと思われていたが、最近報告例が増加し、本邦においてわれわれが調べた範囲で31例の報告が認められる。最近当大学においても多房性嚢胞状腎細胞癌を2例経験した。また、日本泌尿器科学会東海地方会においても報告を聴く機会があり、考えられているよりは、発生頻度が高いのではないかと思われる。2例中1例は多房性腎嚢胞より発生した腎細胞癌との鑑別に苦慮した。

多房性嚢胞状腎細胞癌の2例を報告するとともに、多房性腎嚢胞に合併した腎細胞癌との鑑別診断について考察を加えた。

#### 症例1

患者は48歳男性検診時血尿より腹部エコースクリーニングを受け、右腎腫瘍を指摘され精査のため平成3年7月当科を受診した。既往歴に特記事項は認めなかった。家族歴では父親が腎不全で透析を受けていたが詳細は不明である。

入院時現症、血液生化学検査成績、検尿結果に異常は認められなかった。

DIP で右腎盂、腎杯の下方よりの圧排が認められた。

CT では隔壁により分けられた嚢胞状腫瘍が認められた。

腎動脈造影では血管像は全体としては hypovascular であるが、一部に不整血管像が認められた。

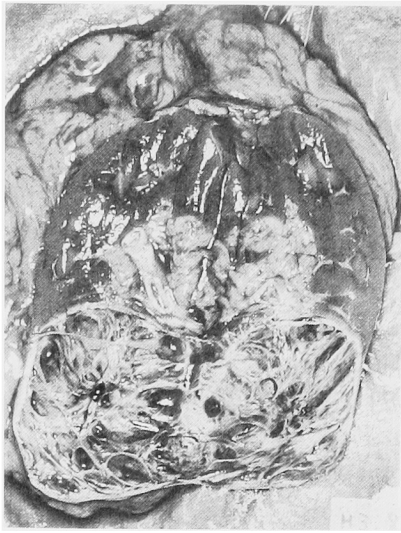


Fig. 1. Gross specimen shows multilocular cystic appearance. Cysts contained hemorrhagic fluid.

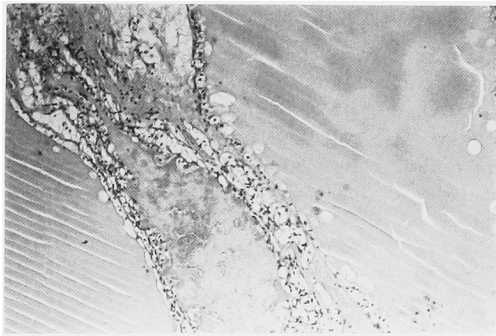


Fig. 2. Microscopical appearance of case 1 showed clear tumor cells line in cysts. Tumor cells observed within intercystic septa.

多房性嚢胞状腎細胞癌の診断のもとに平成3年8月29日右根治的腎摘出術が行われた。

手術所見および腫瘍肉眼所見：手術は経腹的到達法で行われた。腫瘍と周囲との癒着もなく、腫瘍は68×72×60 mmで周囲は厚い結合織に包まれていた。剖面では腫瘍は大小さまざまな嚢胞よりなり、嚢胞内溶液は赤褐色で古い出血を思わせた。各嚢胞と腎盂の交通はなく、正常腎実質と腫瘍は被膜により区別されていた (Fig. 1)。

組織学的所見：組織学的には各嚢胞内腔面は細胞質の明るい腫瘍細胞により覆われていた。嚢胞間の隔壁も腫瘍細胞のびまん性増殖が認められ (Fig. 2)、多房

性嚢胞状腎細胞癌 clear cell subtype grade 1, pT2, N0, M0, V0 と診断された。

#### 症例2

患者は41歳女性、家族歴、既往歴に特記所見はない。

右腰痛にて近医受診し、DIP, CTにて右腎腫瘍が認められ、平成2年10月当科入院した。

入院時現症、血液生化学的諸検査、検尿結果に異常は認められなかった。

DIPでは、右腎は下方に圧杯されており左腎も、回転異常を示していた。

エコーでは嚢胞の集合した腫瘍が認められた。

CTでは、右腎上方に隔壁により多くの嚢胞に分けられた嚢胞状腫瘍が認められた。

腎動脈造影では血管像は全体としては hypovascular であるが、一部に不整血管像が認められた。

多房性嚢胞状腎細胞癌の診断のもとに、平成2年10月11日右根治的腎摘出術が施行された。

手術所見および腫瘍肉眼所見：手術は経腹的到達法で行われた。腫瘍と周囲との癒着もなく、腫瘍は70×65×55 mmで周囲は厚い結合織に包まれていた。剖面では、大小さまざまな嚢胞によりなり、各嚢胞内溶液は黄色透明であった。嚢胞と腎盂との交通は認められず、正常腎組織は、被膜により区別されていた (Fig. 3)。

組織学的所見：多くの嚢胞壁は硝子化傾向の強い纖維組織によりなり、嚢胞内腔は扁平化した上皮により

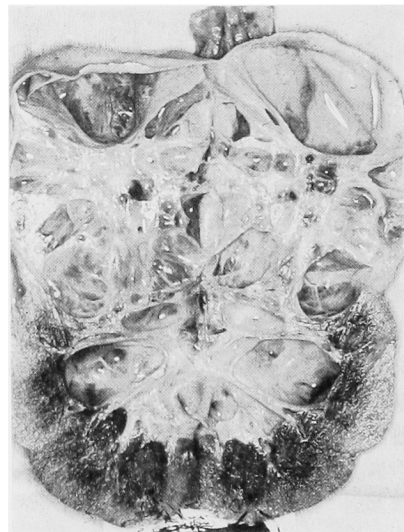


Fig. 3. Gross specimen shows multilocular cystic appearance. Cysts contained clear fluid.

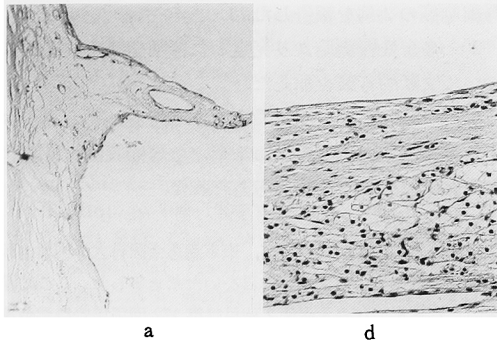


Fig. 4. a. In many cysts, the wall is lined by a single layer of flattened epithelium. Septa were composed of hyalinized tissue. b. In some areas of the septa clear tumor cells were observed in the wall.

覆われていた (Fig. 4a). 一部の隔壁中に細胞質の明るい腫瘍細胞のびまん性浸潤が認められた (Fig. 4b). 腫瘍細胞の認められない嚢胞も二次変性したものと考えられ, 多房性嚢胞状腎細胞癌 clear cell subtype, pT2, N0, M0, V0 と診断された.

## 考 察

腎癌が嚢胞状形態を示すことは良く知られたことで, Mayo Clinic の成績によれば約 4% は cystic adenocarcinoma の形態を示すという<sup>1)</sup>. 多房性嚢胞状腎細胞癌はこれらの特殊なものと考えられている. この診断においてしばしば問題となるのは, 肉眼的にはまったく同一の形態をとり, その診断基準まで満たすが, まったく別の疾患と考えられる多房性腎嚢胞という疾患が存在し, したがって, 多房性腎嚢胞に腎癌が合併したものととの鑑別である. この鑑別はベテランの病理医にとってもしばしば難しいとされている. これまでに両者のどちらかの形で本邦で発表された症例は, われわれが調べた範囲で 31 例ある<sup>2-6)</sup>. 15 例が多房性嚢胞状腎細胞癌として報告されている.

今回われわれの 2 例目の症例では肉眼的所見で嚢胞内容液が, 黄色透明であった. また組織所見では, 一部に腫瘍上皮の残存が認められたが, 大部分は立方一扁平上皮であり, また嚢胞間間質に腫瘍細胞が認められない部分が多かった. 一般に多房性腎嚢胞では, 嚢胞は黄色透明な液で満たされており, 出血は認められないとされている<sup>10)</sup>. 一方多房性嚢胞状腎細胞癌においては, しばしば新旧の出血に基づき褐色な液で満たされていることが知られている<sup>11)</sup>. また組織学的には多房性嚢胞状腎細胞癌では一般に嚢胞上皮は腫瘍細胞で覆われ, 嚢胞間間質は腫瘍細胞で成立していると

の記述が多い. 前述の肉眼的組織学的特徴より当初は多房性腎嚢胞に合併した腎細胞癌と判断していた. その後文献的検討を加えるうちに, このような診断をするためには多房性腎嚢胞であることを証明しなくてはならないとの判断にいたった.

さて多房性腎嚢胞は, 近年報告例が増加しこれまでに 100 例以上の報告が認められる稀な嚢胞状腎疾患である. その診断基準としては Boggs and Kimmerstiel らの示した 1) The lesion must be multilocular 2) The cysts must, for the most part, be lined with epithelium 3) The cysts must not communicate with the pelvis 4) The residual renal tissue should be essentially normal, except for pressure atrophy 5) Fully developed, mature nephra or portions of such should not be present within the septa of the cystic lesion の 5 項目が用いられる<sup>7)</sup>. この基準は, 腎の他の嚢胞性疾患特に嚢胞腎との鑑別に主眼がおかれ, 組織学的記載がない. 多房性嚢胞状腎細胞癌もこの 5 項目を満たすため, 5 項目の診断基準のみでは両者の区別は不可能である.

多房性腎嚢胞の組織像は各発表者によりかなり違いが認められ, その病因は, いまだに明らかではない. 一部の著者らの強調する, 小児例でよく見られる nephroblastoma 類似の組織所見が認められ, したがって neoplastic な面が強調されるものは成人例では認められないとの報告もある<sup>8,9)</sup>. 多房性腎嚢胞の所見を持ち, その組織中に腎癌が認められる症例は, 成人例であるので, 鑑別のためには多房性腎嚢胞の成人症例における組織所見の詳細な報告が必要と思われるが, いまだはっきりしない. また hobnail 上皮の存在についても記述してあるもの, ないもの種々であり, hobnail 上皮の存在のみにすべてを帰することはできない.

われわれの症例では, 結局腎病理の専門家の判断を仰ぐこととし, 藍沢茂雄先生に診断していただいた.

われわれが混乱したように多房性嚢胞状腎細胞癌か, 多房性腎嚢胞に腎癌が合併したのかについては以前はかなり混乱が見られた. たとえば, Posso ら<sup>13)</sup> は多房性腎嚢胞に発生した腎細胞癌の 1 例を報告している. この組織診断は Armed Forces Institute of Pathology (以下 AFIP) によりなされた. 一方同じ AFIP から Madewell ら<sup>14)</sup> は, AFIP にある多房性腎嚢胞より発生したと報告されているいくつかの症例を再検討し, これらはすべて, 多房性嚢胞状腎細胞癌であり, また, 文献上の検討でも, 多房性腎嚢胞より発生した腎細胞癌は認められないとしている. さらに

AFIP から Hartman ら<sup>11)</sup>は、多房性腎嚢胞からは腎細胞癌は発生しないとまで述べている。周知のように AFIP には全世界よりかなり膨大な組織が送られその診断が行われている。その AFIP でこのような結論が出された意味は大きいものと思われる。実際、欧米文献では、1982年以降は、ほとんど多房性嚢胞状腎細胞癌として報告されており、このような概念が定着しつつあるように思える<sup>15-17)</sup>。また本邦においても1988年以降多房性嚢胞状腎細胞癌としての発表が多いが若干の混乱も認められる。たとえば松田<sup>9)</sup>らの報告の組織所見は、われわれの第2例目とほとんど同一のものと思われ、組織学的検討が必要と思われる。またこれまでに多房性腎嚢胞に合併した腎細胞癌として発表された症例の再検討も必要ではないかと思われる。

以上より形態的に多房性腎嚢胞を示すものの中に腎細胞癌を認めたときは、多房性嚢胞状腎細胞癌と診断してよいのではないかと考えられる。また診断に自信が持てないときは、腎病理の専門家の先生の判断を仰ぐことも必要と思われた。

画像診断で多房性嚢胞状腎疾患を認めた場合、画像診断上での悪性腫瘍の否定が、たとえ血管造影を施行したとしても難しく<sup>12)</sup>また、たとえ術中迅速病理診断でも診断を誤ることが知られている<sup>12,13,18)</sup>。今回の報告症例でも、術中迅速病理診断による診断はまず不可能だったと思われ、腎摘出術が広く施行されていることは良く理解される場所である。ただし Wall ら<sup>12)</sup>は多房性腎嚢胞として腎部分切除を行ったが、永久標本より腎細胞癌とされ、その後根治的腎摘出術を施行した3例を報告している。これらの症例では、後に摘出された標本からは腫瘍組織は認められず、結果的には腎部分切除術で充分であったと思われる。

多房性嚢胞状腎細胞癌として報告された症例は、腎細胞癌としては、組織学的に以下の3項目の特徴がある。(1)周腎腎組織とは厚い結合織により明瞭に区分されている。(2)摘出された組織において、多房性腫瘍部以外に腫瘍組織を認めたとの報告はまだ認められない。(3)顆粒細胞型が1例認められるが<sup>12)</sup>、他は淡明細胞型で、grade 記載のあるものではいずれも low grade である。以上3点を考慮すると、たとえ多房性腎疾患が多房性嚢胞状腎細胞癌であったとしても、腎部分切除ができれば、そのよい適応となるのかもしれない。

## 結 語

1) 48歳男子, 41歳女子に認められた多房性嚢胞状

腎細胞癌の2例を報告した。

2) 多房性腎嚢胞より発生した腎細胞癌との鑑別について文献的考察を加えた。

3) 形態的に多房性腎嚢胞であっても一部の上皮および隔壁に腎細胞癌を認める時は多房性嚢胞状腎細胞癌と診断してよいものと考えられた。

本症例の組織診断において、東京慈恵会医科大学病理学教室 蓋沢茂雄先生に多大な御助言をいただきました。ここに感謝いたします。なお本症例2例目は第172回泌尿器科学会東海地方会において報告した。

## 文 献

- 1) Levine SR, Emmett JR and Woolner LB: Cyst and tumor occurring in the same kidney. *J Urol* **91**: 8-9, 1964
- 2) 高木康治, 金井 茂: 友吉唯夫, ほか: 多房性嚢胞状腎細胞癌の1例. *泌尿紀要* **38**: 553-556, 1992
- 3) 金 哲将, 朴 勺, 友吉唯夫, ほか: 多房性嚢胞状腎細胞癌の1例. *泌尿紀要* **37**: 163-167, 1991
- 4) 北角嘉徳, 佐藤 稔, 原 啓, ほか: 両側多房性嚢胞状腎細胞癌の1例. *日泌尿会誌* **83**: 405-408, 1992
- 5) 松田久男, 谷口成実, 森川 満, ほか: 腎細胞癌を合併した多房性腎嚢胞の1例. *泌尿紀要* **38**: 693-696, 1992
- 6) 宮本信一, 佐野 明, 正田智也, ほか: 薬理学的血管造影が有用であった嚢胞性腎細胞癌の1例. *臨放線* **37**: 733-736, 1992
- 7) Boggs LK and Kimmelstiel P: Benign multilocular cystic nephroma: report of two cases of so called multilocular cyst of the kidney. *J Urol* **76**: 530-541, 1956
- 8) Yonezawa S, Takunaga M, Satou E, et al.: Cystic partially differentiated nephroblastoma and multilocular cyst of the kidney. *Acta Pathol Jpn* **29**: 471-478, 1979
- 9) Colman M: Multilocular renal cyst: case report, ultrastructure and review of the literature. *Virchows Arch [A]* **387**: 207-219, 1980
- 10) Hill GS: Cystic and dysplastic disease of the kidney: Acquired lesions. In: *Uropathology*. Edited by Hill GS, pp 173-188, Churchill Livingstone, New York, 1989
- 11) Hartmann DS, Davis CJ, Johns TJ, et al.: Cystic renal cell carcinoma. *Urol* **28**: 145-153, 1986
- 12) Wall JG, Schroder FH and Scholtmeijer RJ: Diagnostic workup and treatment of multilocular cystic kidney: Difficulties in differential diagnosis. *Urol* **28**: 73-77, 1986
- 13) Posso M, Safadi D and Van Dyk OJ: Uni-

- lateral polycystic kidney or multicystic kidney associated with focal mural renal cell carcinoma: Presentation of a case. *J Urol* **109**: 559-563, 1973
- 14) Madewell JE, Goldmann SM, Davis CJ, et al.: Multilocular cystic nephroma: A radiographic-pathologic correlation of 58 patients. *Radiology* **146**: 309-321, 1983
  - 15) Lewis RH, Clark ME, Dobson CL, et al.: Multilocular cystic renal adenocarcinoma arising in a solitary kidney. *J Urol* **127**: 314-316, 1982
  - 16) Wills JS: Cystic adenocarcinoma of the kidney mimicking multilocular renal cyst. *Urol Radiol* **5**: 51-53, 1983
  - 17) Laperriere J, Filion R, Houde M, et al.: Renal cell carcinoma presenting as multilocular cystic mass. *Urol* **28**: 155-158, 1986
  - 18) Silva EG and Kreamer P: Intraoperative pathologic diagnosis. Frozen section and other techniques. pp. 228-231, Williams and Wilkins, Baltimore, 1984
- (Received on June 30, 1992)  
(Accepted on September 19, 1992)