

Congenital Mesoblastic Nephroma に類似した 成人腎過誤腫の1例

倉敷中央病院泌尿器科（部長：町田修三）

寺 井 章 人
寺 地 敏 郎
町 田 修 三

A CASE OF ADULT RENAL HAMARTOMA RESEMBLING CONGENITAL MESOBLASTIC NEPHROMA

Akito TERAI, Toshiro TERACHI and Shuzo MACHIDA

From the Department of Urology, Kurashiki Central Hospital

(Chief: Dr. S. Machida)

A 35-year old man was hospitalized for left flank pain. IVP showed left non-visualizing kidney with multiple renal calculi. Selective renal arteriogram revealed avascular mass in the left upper pole. The upper calyx was irregularly distorted. Left nephrectomy was carried out. Grossly, the upper pole was replaced by whitish, firm and homogeneous tumor, which was 7×7 cm in diameter and protruded into the upper calyx. Histologically, the tumor was composed of both epithelial and mesenchymal components. The epithelial elements consisted of cysts and tubules, and the mesenchymal elements of loosely textured fibroblasts and smooth muscle cells. Other elements could not be identified. This case was diagnosed as renal hamartoma histologically resembling congenital mesoblastic nephroma of infancy.

Congenital mesoblastic nephroma is rare in adults. Continued maturation may finally transform it either to benign mixed tumor as in our case or fibromatous tumor if stroma matures dominantly.

Key words: Hamartoma, Congenital mesoblastic nephroma, Kidney

緒 言 症 例

Congenital mesoblastic nephroma は新生児腎腫瘍として広く知られているが、最近組織学的に類似した成人腎腫瘍が数例報告されている。これらは上皮成分と非上皮成分からなる良性混合腫瘍像を呈するが、congenital mesoblastic nephroma の成人例と単純に考えてよいかどうか疑問が残る。最近われわれは、嚢胞や腺管腔などの上皮成分と myxoid な基質からなる成人腎過誤腫の1例を経験したので、病理学的的位置付けについて若干の文献的考察を加えて報告する。

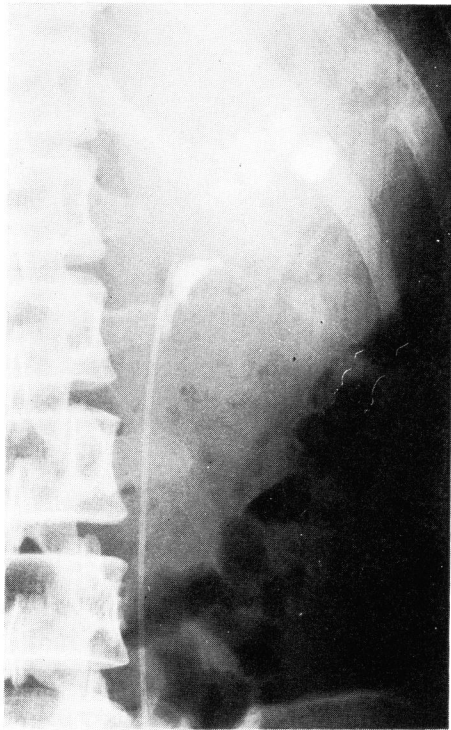
患者：木○豊○，35歳，男性

主訴：左側腹部痛

家族歴および既往歴：特記事項なし

現病歴：1982年12月頃より1カ月に1回ほど肉眼的血尿をくり返すも放置していた。1983年6月3日突然左側腹部痙攣発作が出現したため同日当科を受診した。IVPにて左腎結石および左尿管結石を認めたため入院となった。

現症：体格中等度。栄養状態良好。胸部打聴診にて異常なし。腹部では両腎ともに触知されず。



A



B

Fig. 1.A,B, RP shows irregularly filled upper calyx with multiple calculi.

検査成績：末梢血：赤血球 469×10^4 ，白血球 $6,600$ ，Hb 14.9 g/dl，Ht 45.3%，血小板 25.3×10^4 。血沈：1時間値 2 mm，2時間値 7 mm。血清：BUN 15 mg/dl，クレアチニン 1.0 mg/dl，Na 143 mEq/l，K 4.0 mEq/l，Cl 107 mEq/l，血清総蛋白 6.3 g/dl，AG 比 1.63，GOT 11 IU/l，GPT 12 IU/l，LDH 263 IU/l。尿所見：蛋白（+），糖（-），赤血球 30~40/HPF，白血球 10~20/HPF。

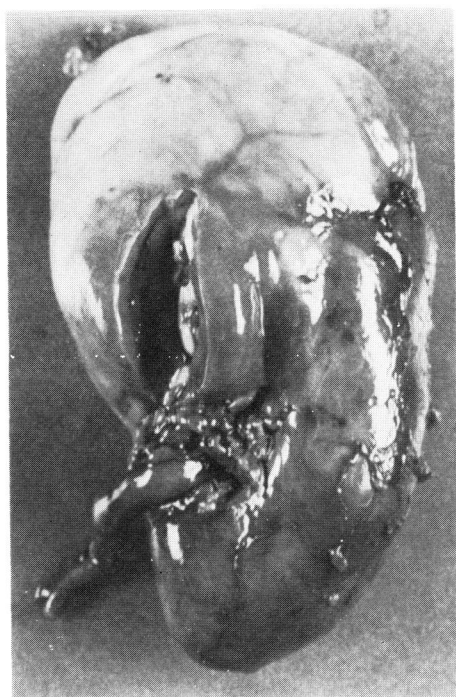
レ線検査所見：IVPにて左腎は造影されず，腎盂尿管移行部および腎内に多数の結石を認めた。RPでは上腎杯は不規則に変形され，結石は上腎杯内に存在した（Fig. 1）。選択的左腎動脈造影では左腎上極に avascular area を認めた（Fig. 2）。RP所見と比較すると，この avascular area は上腎杯の上方に拡がっていることがわかる。なお腹部大動脈造影では，他に左腎への動脈は確認できなかった。

以上より腎結石のみならず腎腫瘍の可能性も考えられたため，1983年6月15日第12肋骨床切開による左腎摘除術を施行した。

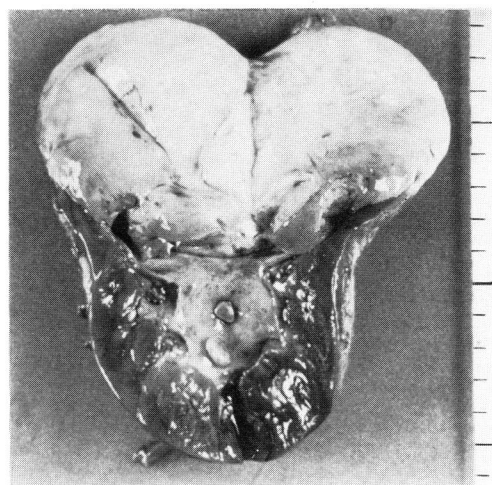
病理学的所見：左腎上極は下極に比べ腫大しており白色調の腫瘍で置き換えられていた。腎実質と腫瘍とはきわめて滑らかに連続していた（Fig. 3A）。断面で



Fig. 2. Capillary phase of renal angiogram shows avascular mass in the left upper pole.



A



B

Fig. 3. A,B Tumor measures 7×7 cm in diameter, is whitish, firm and homogeneous and protrudes into the upper calyx.

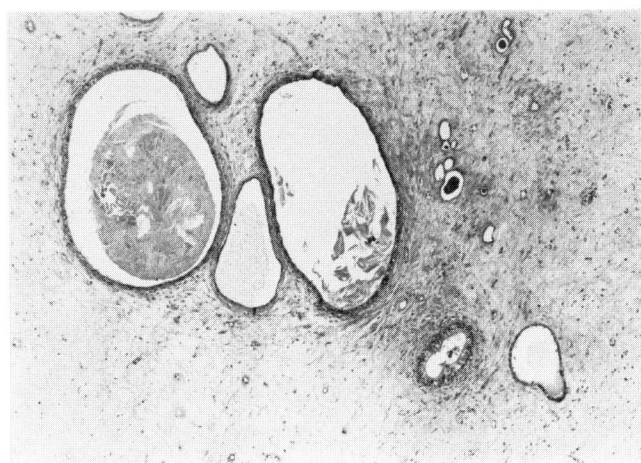


Fig. 4. Microscopically tumor is composed of myxoid stroma with interspersed cysts and tubules of various sizes. H & E, ×40

は腎上極に 7×7 cm の白色均質な腫瘍を認めた。硬度は弾性硬であるがやや水っぽく粘液腫様であった。腫瘍は腎盂腎杯を上方より圧排しつつ、一部は腎盂内に突出していた。結石は腫瘍突出部と腎盂粘膜との間隙内に存在していた (Fig. 3B)。組織学的には、myxoid な基質が主体を占める非上皮成分と、大小の嚢胞ならびに腺管状構造を示す上皮成分からなる混合腫瘍である (Fig. 4)。嚢胞は径 1 cm 弱から顕微鏡的

レベルまでさまざまな大きさを示し、内腔は円柱上皮あるいは扁平化した 1 層の上皮で被われている。嚢胞内にはしばしば淡い蛋白様物質が含まれており、尿管管に類似した腺管状構造も認められる。基質内にはまばらに紡錘形の細胞が増殖しており、おもに fibroblast, 加えて平滑筋細胞も混っている (Fig. 5)。組織学的に他の element は確認できない。腫瘍細胞には異形成や核分裂像は認められない。腫瘍と腎実質の

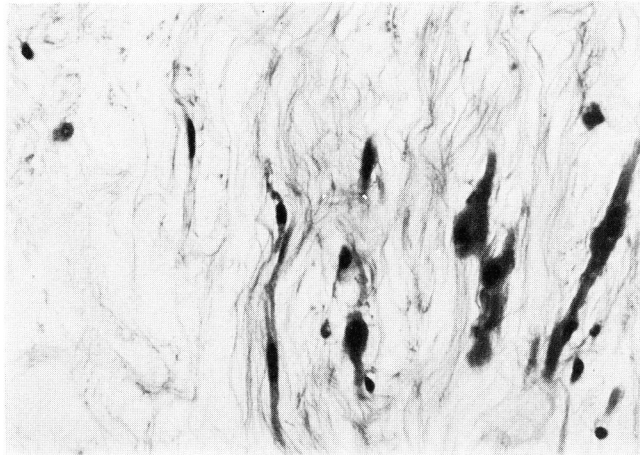


Fig. 5. Stroma is composed of loosely textured fibroblasts (left) and smooth muscle cells (right), H & E, $\times 400$

Table 1. 類似した組織像を示す成人腎腫瘍報告例

症例	報告者	年齢	性別	患側	肉眼的発育形態
1	Block・ほか	31	女	左	腎下極, 径3.8cm 髓質中心, 被膜まで達する
2	Fischer・ほか	44	女	左	腎下極, 3.5×2.7×2.4cm 髓質に限局
3	説田・ほか	31	女	左	腎上極の実質から腎盂内にホリープ状に発育
4	和志田・ほか	23	女	左	腎盂尿管に鑄型状にはまり込む
5	高橋・ほか	16	男	左	14.5×15.0×10.5cm 腎下極以外は腫瘍で占められる

境界はほぼ明瞭であるが, 被膜構造は存在せず周辺腎組織に圧迫萎縮はみられない。腫瘍の腎盂内突出部は菲薄化した移行上皮で被われている。また腫瘍の腎被膜外浸潤は認められない。

以上の所見より, 本症例を congenital mesoblastic nephroma に類似した腎過誤腫と診断した。術後経過は順調で6月29日退院した。

考 察

本症例は myxoid な基質が主体の非上皮成分と, 大小の腺管腔の上皮成分とからなる成熟度の高い腎過誤腫である。類似した所見を示す成人腎腫瘍の報告例は数少く^{1,5)}, congenital mesoblastic nephroma of adult^{1,5)}, myoepithelial hamartoma²⁾, hamartoblastoma³⁾ など種々の名称で報告されている (Table 1)。これら一群の腫瘍を考えるうえでの問題点は, 新生児期の特異な腎腫瘍として知られる congenital mesoblastic nephroma (of infancy) との関連性で

あろう。

Congenital mesoblastic nephroma は, Wilms 腫瘍に類似しているが組織学的にも臨床的にも良性の性質を有する特異な新生児腎腫瘍として, Bolande⁶⁾ により提唱されて以来, 広く認識されるようになったものである。腫瘍組織は, 好酸性の細胞質をもつやや長い紡錘形の細胞が比較的均一な拡がりを示したり, 束状を呈しており, その腫瘍細胞群の中には, 正常なあるいはときには dysplastic な糸球体や尿細管が島状に散在している。この傾向は腫瘍の周辺部にとくに多く, 中心部になるほど少いという。本腫瘍の組織発生については諸説があるが, Bolande は Wilms 腫瘍の成熟型・分化型としてとらえている。

Congenital mesoblastic nephroma はほとんどが新生児期に発見され, 年長児例は激減し, さらに成人例はまれであるため, 放置された場合に, その後の自然経過については不明の点が多い。Bolande は総説の中で, 1歳近くになって発見された症例では, 新生

児例と組織像は基本的に同じであるが、基質がより成熟しコラーゲンが増加する傾向があると述べている。この点に関連し、Block ら¹⁾は Bolande に標本の検閲を受けた31歳の症例を congenital mesoblastic nephroma of adult として報告しているが、小児例に比べより collagenized されているとの指摘を受けている。長期間 maturation が続いた場合に、基質が優位に成熟し最終的に fibroma 様の組織像を呈するようになるか、自験例のごとく上皮成分と非上皮成分が混在した過誤腫となるのかは不明である。いずれにせよ摘除された腫瘍の組織像からその成立過程を知することは難しく、今後症例を重ねつつ検討されるべき問題であろう。

われわれは成人腎線維腫の本邦報告例を調べてみた。学会報告例が多く文献上十分な検索はできなかったが、組織所見の記載がある3例⁷⁻⁹⁾ではいずれも腫瘍周辺部に腎組織や尿細管の埋没像が認められており、腫瘍中の上皮成分の残存と考えられぬでもなかった。今後腎線維腫の症例に遭遇したさいには、congenital mesoblastic nephroma との関連性という観点からもとらえてみる必要はあろうかと思われる。

Table 1 に示す症例は、説田ら³⁾の例で腫瘍細胞に軽度の異形成を認める以外はおおむね成熟度の高い過誤腫像を呈している。肉眼的発育形態をみると、和志田ら⁴⁾が指摘しているとおり、いずれも腎髄質を主体として発育している様相を呈している。ただし高橋ら⁵⁾の症例は巨大腫瘍のため髄質との関係は不明である。われわれの症例は、肉眼的および組織学的所見からみると髄質中心と考えられる。肉眼的発育形態からみて非常に興味深い congenital mesoblastic nephroma (2歳男児)が松木ら¹⁰⁾により報告されている。腫瘍は腎実質から腎盂内に向ってポリープ状に発育し腎盂内を充満しており、説田ら・和志田らの症例ときわめて類似している。すべての congenital mesoblastic nephroma がこのように髄質中心に発育するかどうかは不明であるが、Table 1 に示す一群の腫瘍がまさしく congenital mesoblastic nephroma の成人例である可能性は高いと思われる。しかしわれわれは、腎腺維腫が congenital mesoblastic nephroma の成人例として、連続した histological spectrum の1型である可能性も捨てがたいと感じる。

また、congenital mesoblastic nephroma も angiomyolipoma もともに hamartoma の名称で呼ばれることがあるが、後者は腎皮質から発生することが多く、しばしば結節性硬化症を合併することを考えると、組織像はともに過誤腫であるが発生機序は異なっ

ているという印象を持つ。以上 congenital mesoblastic nephroma と成人腎良性腫瘍との関係につき1考察を加えたが、いずれにせよ現時点ではまだ症例が少ないため、今後さらに多くの症例報告を待って検討されねばならないであろう。

結 語

左腎結石を合併して発見された35歳男性の左腎過誤腫の1例を報告した。嚢胞や腺管腔などの上皮成分と myxoid な基質からなり、congenital mesoblastic nephroma の成人例とみなした。

文 献

- 1) Block NL, Grabstald HG and Melamed M R: Congenital mesoblastic nephroma (leiomyomatous hamartoma): First adult case. J Urol 110: 380~383, 1973
- 2) Fischer CP, Herwig KR and Gikas PW: Adult renal myoepithelial hamartoma. Urology 12: 594~597, 1978
- 3) 説田 修・蟹本雄右・波多野紘一・河田幸道・宮下剛彦・池田庸子・尾島昭次：上皮と平滑筋よりなる腎過誤芽腫、自験例と本邦113例の腎過誤腫性腫瘍報告例との比較。泌尿紀要 25: 49~58, 1979
- 4) 和志田裕人・津ヶ谷正行・伏見 登・加藤次朗・平林紀男：特異な腎過誤腫の1例。日泌尿会誌 74: 853~860, 1983
- 5) 高橋伸也・森田 秀・古島 浩・成瀬克邦・室博之：16歳男子にみられた Mesoblastic Nephroma の1例。臨泌 39: 137~140, 1985
- 6) Bolande RP: Congenital mesoblastic nephroma of infancy. Perspect Pediatr Pathol 1: 227~250, 1973
- 7) 武井秀夫：巨大な腎線維腫の1例。信州医誌 14: 361~365, 1965
- 8) 陣内謙一・小島道夫・中野 章・入江康司：良性腎腫瘍（線維腫）の1例と本邦報告例の統計的観察。西日泌尿 39: 650~654, 1977
- 9) 関口 浩・武田正雄：腎線維腫の1例。臨泌 32: 267~270, 1978
- 10) 松木 尚・守屋 昭・丸山良夫・小原壮一・馬場谷勝廣・平尾彦彦・平松 侃・岡島英五郎・吉川昇：腎盂内および尿管内にポリープ状の増殖形態を示した Congenital Mesoblastic Nephroma の1例。泌尿紀要 30: 1075~1084, 1984

(1985年3月25日受付)