

Pelvic lipomatosis の1例

周東総合病院

泌尿器科 徳原正洋

内科 光宗正就*

山口大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 酒徳治三郎教授)

平山 嗣

酒徳治三郎

PELVIC LIPOMATOSIS: REPORT OF A CASE

Masahiro TOKUHARA and Seisyū MITSUMUNE**

*From the Department of Urology and Internal Medicine,** Shūtō Hospital, Yanai, Japan*

Akira HIRAYAMA and Jisaburo SAKATOKU

*From the Department of Urology, Yamaguchi University School of Medicine, Ube, Japan**(Director: Prof. J. Sakatoku, M. D.)*

A 59-year-old-man visited with chief complaint of the left lower abdominal pain of several years duration. He was found to have pelvic lipomatosis.

Up to the present time almost no report is available on pelvic lipomatosis in Japan.

はじめに

1959年 Engels⁶⁾ によって、骨盤内に多量の脂肪組織が存在するため、下腹部の腫瘤形成をみとめ、そしてレ線学上直腸・S状結腸、膀胱および尿道前立腺部の奇怪な変形をきたし、骨盤内新生物と誤認されそうな5症例を "Sigmoid colon and urinary bladder in high fixation: roentgen changes simulating pelvic tumor" と題して発表した。1961年 Leuzinger⁷⁾ によって同様の症例が追加された。その後1968年 Fogg⁸⁾ によって、"pelvic lipomatosis" と命名され、症例の追加がなされた。今日までわれわれの集めた文献では、欧米で40例の症例発表がみられる。しかしながら本邦においてはわれわれの調べた範囲ではまだ報告がないようである。このたびわれわれは本症の1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 59歳 男子 商業.

初診: 1972年12月1日.

主訴: 左下腹部痛.

家族歴: 特記すべきものはない.

既往歴: 19歳のとき左そけいヘルニアの手術をうけた。28歳のとき右陰囊内容とおもわれるものの一過性の腫脹があった。39歳のとき虫垂切除術をうけた。

現病歴: 約6~7年前よりときどき左下腹部に鈍痛をきたしていた。受診1カ月前ごろよりこの疼痛は増強し、歩行困難となり本院内科および整形外科を受診した。しかし原因もはっきりせず、泌尿器科的疾患を疑われ当科に紹介された。なお問診によると、排尿回数は5~8回、再延性排尿、残尿感をみとめている。便通1日1回。

現在: 体格頑健型、栄養良好。脈拍72、整。血圧130/60 mmHg。眼瞼結膜貧血なし。眼球結膜黄染なし。口腔内、頸部に異常をみとめない。胸部は打・聴診上異常をみとめない。腹部は平坦で軟。右下腹部および左そけい部に約3cmの手術痕をみとめる。腸音正常。肝・腎・脾いずれも触知しえない。膀胱部ではやや左方でやわらかい平坦な腫瘤を触知する。これとはときには膀胱貯留腫の一部をふれているような感じがした。しかし境界ははっきりしない。外陰部ではと

* 現松山赤十字病院

くに異常をみとめない。直腸診で前立腺ははっきり触知しえない。

入院時一般検査成績: 1) 尿; 混濁 (-), 反応酸性, 蛋白 (-), 糖 (-), ウロビリノーゲン正常, 沈渣は異常所見をみとめず, 菌陰性. 2) 血液一般; Hb 80%, RBC 381×10^4 , WBC 4,200, Ht 38%, 白血球分類 seg 61, stab 8, mon 6, lympho 25, その他異常をみとめない. 3) 血液生化学; 血清総蛋白量 6.3 g/dl, 血清蛋白分画 albumin 58.8%, α_1 5.3%, α_2 10.6%, β 9.4%, γ 15.9%, A/G 比 1.43, 総コレステロール 188 mg/dl, 血糖 82 mg/dl, BUN 16 mg/dl, クレアチニン 1.0 mg/dl, P 2.9 mg/dl, Cl 102 mEq/l, Ca 4.0 mEq/l, K 4.1 mEq/l, Na 140 mEq/l. 4) 血清学; ASLO 100, RA 陰性, CRP (-), 梅毒反応三法いずれも陰性. 5) 肝機能その他; 黄疸指数 7, 総ビリルビン量 0.8 mg/dl, CCF 陰性, TTT 1.1 単位, ZTT 5.0 単位, Al-P 7.3 単位, acid-P 2.2 単位, LDH 320 単位, GOT 9 単位, GPT 18 単位. 6) 水試験; 1020~1000. 7) 濃縮試験; 1025. 8) PSP 試験; 30% (15分値). 9) 糞便検査; 異常をみとめない. 10) 心電図所見; 正常洞調律, 正常型, 冠不全. 11) 胸部レ線所見; 異常をみとめない. 12) 赤沈値; 1時間値 5 mm, 2時間値 14 mm.

膀胱鏡所見: 膀胱鏡挿入不可能.

泌尿器科的レ線所見: 1) KUB; 結石陰影そのほか異常陰影をみとめない. しかし骨盤部ではかなり radiolucent で, 仙骨の構造がはっきりみられる (Fig. 1. A, B). 2) IVP; 両腎とも機能, 形態に異常なく, 尿管の走行にも特に異常をみとめない. また尿管圧迫帯除去後の全尿路撮影で膀胱は elongated bladder (banana shaped bladder) をしめしている (Fig. 2. A, B). 3) UCG; 尿道は前立腺部で前方に急に弯曲し, また延長がみられ, そして膀胱は典型的な banana shaped bladder をしめしている. さらに前立腺への造影剤の流入をみとめる (Fig. 3. A). 正面像では膀胱底は挙上し, elevated and inverted tear drop shaped bladder をしめしている (Fig. 3. B). 4) 精路造影; 型のごとく経精管におこなったが, 左側ではまったく注入できず, 逆に穿刺部位よりクリーム状の分泌物の排出をみとめた. 右精囊腺には異常はみとめられない (Fig. 4).

左精管よりの分泌物検査所見: 色は黄白色, クリーム状, 白血球 (-), 赤血球 (-), コレステリン結晶とムおもわれるもの (卍), 一般細菌および結核菌は塗抹・培養とも陰性.

以上の泌尿器科的レ線所見よりあらためて大腸の検

査を追加した.

直腸鏡所見: 20 cm までは観察は可能であった. 走行異常がみられた. すなわち後方より圧迫されていて直線状である. 挿入時, 約 10 cm の位置で固定されているようで挿入困難を感じた. 内景では, 正常粘膜でみられる血管の透見像は一部にしかみられず, 全体としてやや充血状である. しかし潰瘍, 粘膜の凹凸はみられない. これらの所見より潰瘍性大腸炎の初期像か, 他臓器に炎症があって癒着のため固定され, 粘膜面に炎症がおよんだとも考えられないことはない. しかしはっきりと診断をくだす根拠はみとめられない.

直腸生検所見: 異常所見をみとめず, まったく正常組織像である.

逆行性大腸造影所見: 直腸から S 状結腸にかけて straightening および narrowing がみられ, とくに直腸では管状で硬さを感じ, 皺壁は消失している. さらに空気を注入してみると拡張性はやや低下している (Fig. 5. A, B, C).

以上の所見より膀胱後腫瘍 (脂肪腫) を疑って手術をおこなった.

手術所見: 型のごとく恥骨上切開ではいった. 膀胱は多量の脂肪組織につつまれて手術野の直下に露出され, あきらかに後方より挙上されていた. 腹膜を排除しながら膀胱の後方にはいると, 膀胱後腔には多量の脂肪組織をみとめた. しかしあきらかに腫瘍を形成しているものではなかった. この脂肪組織を切除しながら, 膀胱の後面を検索しつつ精囊腺に達した. 左精囊腺もとくに腫大も癒着もなかった. ここで左精囊腺を摘除した. さらに前立腺をみると腫大はみられなかった. つぎに膀胱を開き, 内腔をみたが肉眼的にはまったく異常をみとめなかった. ついで腹膜を開いて腹腔内を検索したがとくに異常をみとめなかったので創を型のごとく閉じて手術を終了した.

組織学的所見: 1) 膀胱周囲組織は正常な脂肪組織で, 炎症反応, ヘモジデリン沈着などはみられない. 2) 精囊腺 (左) は炎症所見もみられず, まったく正常な組織像である.

術後経過: 創は一次的に治癒した. 症状は著明に改善され, 入院前の疼痛はまったく消失した. また術前の排尿障害も問診によると消失している. しかし泌尿器科的レ線所見では術前とほとんど変化はなかった.

現在退院後 1 年あまりになるが, なんら苦痛もなく家業に従事している.

考 察

Pelvic lipomatosis は比較的新な疾患で, 文献

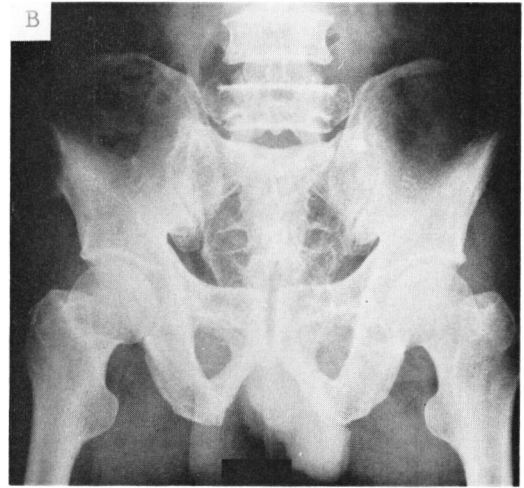


Fig. 1. 単純撮影

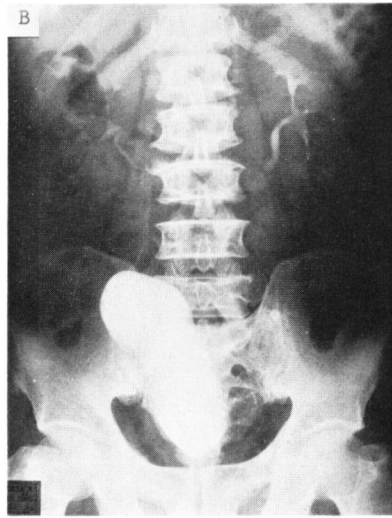
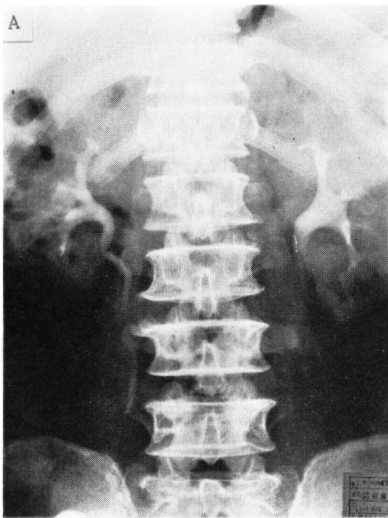


Fig. 2. 排泄性腎盂撮影像



Fig. 3. 尿道膀胱造影像

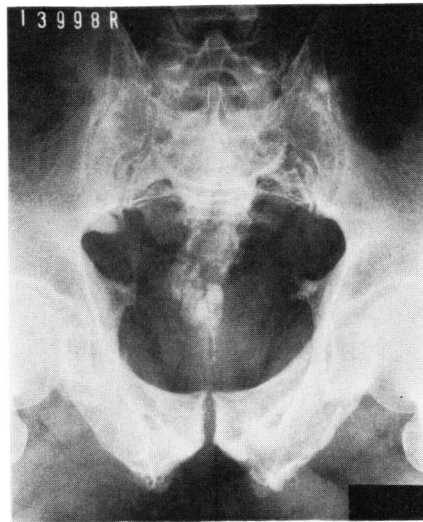


Fig. 4. 精囊腺造影像

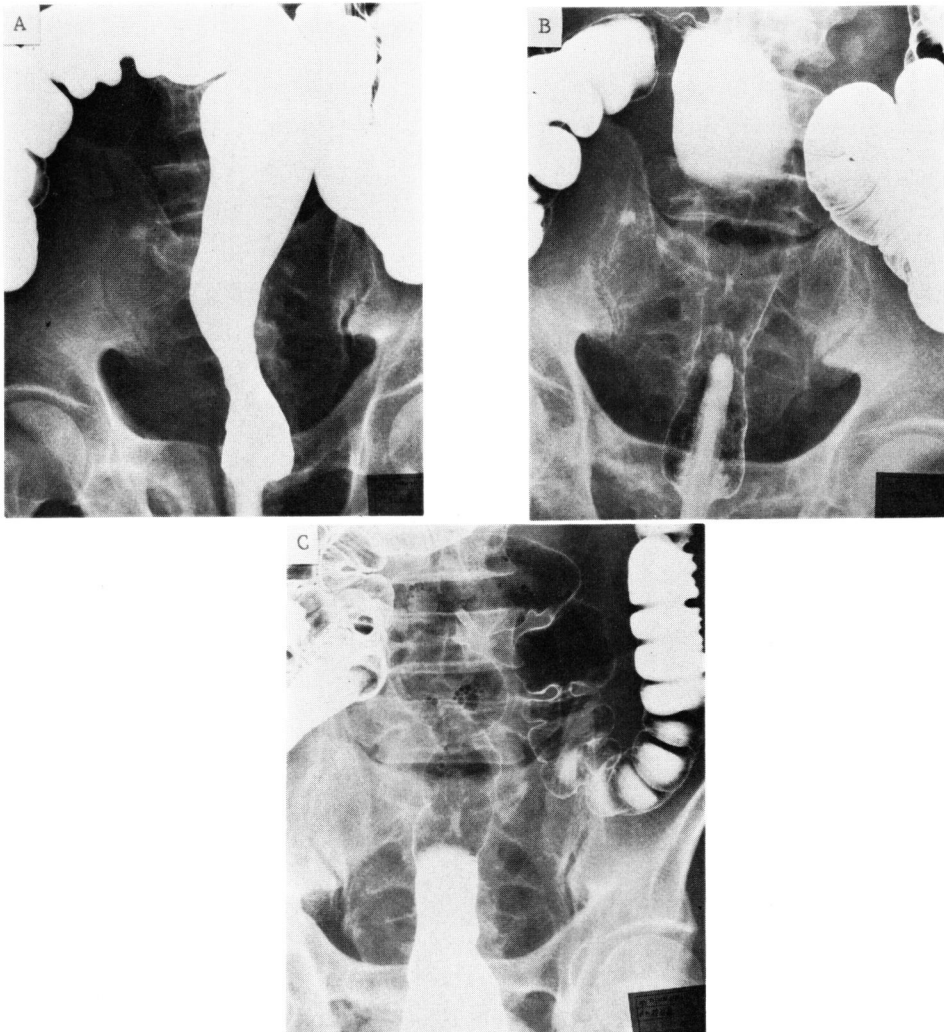


Fig. 5. 逆行性大腸造影像

上では1959年 Engels⁵⁾ によって5例の特異なレ線所見が記載されたのが最初である。その後 Leuzinger⁷⁾ の同様な症例報告について、1968年 Fogg ら⁶⁾ は症例の追加報告をおこない“pelvic lipomatosis”と命名した。その後、欧米ではわれわれの集めた症例報告は合わせて40例に達している。しかし本邦における文献上の報告はいまだみられない。ここで文献を中心に簡単に考察をおこなう。

年齢・性別: 今日までの報告では、最年少者は9歳の男子¹³⁾、最高年齢は80歳の男子⁵⁾で、はっきり記載のある症例33例についてみると、30歳代から50歳代は23例で過半数をしめ、20歳以下また70歳以上は非常に少ない。しかし Moss ら¹³⁾ は9歳の症例を報告し、あまりにも若年者であるからといって無視してはならないと警告している。

性別では、初期の文献では男性特有の疾患と考えられるような記載があるが、1971年 Malter ら¹⁰⁾ によってはじめて女性の症例が報告された。またこの症例が現在までの唯一の女性症例である。

臨床症状および所見: 本症特有な症状はないようである。こんにちまでの報告をみると、発見された動機として、泌尿器科的症状としては、再発性の尿路感染症、血尿、頻尿、夜間多尿、排尿困難、尿線の細小化、急性尿閉、会陰部疼痛などがあげられ、消化器症状としては、嘔気、軽度の便秘があげられているが、はっきりした症状はないようである。そのほか下腹部腫瘍あるいは膨満、腹痛、腰痛があげられている。しかし Moss ら¹³⁾ が、これらの症状は pelvic lipomatosis の診断にはなんら役にたかないとべているように特有の症状ではない。かえて他の疾患の診断にさいしておこなわれた尿路撮影によって発見されている症例もかなりみられる。たとえば Moss ら¹³⁾ の症例では10例中8例に高血圧をみとめ、このうち5例は高血圧症の診断にさいして発見されている。そして尿路症状は retrospective にみいだされている。

理学的所見として、まず体格・栄養では stocky あるいは obese な健康な男子と記載されている症例がある^{4,6,10,12)}。腹部では下腹部に腫瘍を触知する症例が過半数にみられ、この腫瘍もはっきりと限局したものでなく、boggy and fluctant と表現されている。そのほか骨盤外に、すなわち精索⁹⁾、右陰囊内⁹⁾、下腹¹⁵⁾、心膜¹²⁾、腎上極周囲¹¹⁾ への脂肪沈着をともなっている症例もある。また Dercum's disease¹⁵⁾ や四肢の多発性脂肪腫¹⁰⁾ の合併の各1例の報告がみられる。

直腸診では前立腺はふれないうか、または一部をふれるのみであったと記載されているように高位に変位し

ている症例もある。

つぎに膀胱鏡所見は、特徴的な点の一つであるが、尿道の延長と膀胱底部の挙上のため膀胱鏡挿入が困難で、内景はじゅうぶん観察ができないか、またはまったく挿入不可能である。観察できた症例では、膀胱頸部から三角部にかけて cystitis cystica, cystitis glandularis などの所見がみとめられている症例がある。

直腸鏡検査では、直腸鏡の挿入に困難をみとめている症例もあり、施行された症例では走行の異常、すなわち straightening をみとめている。しかし内景には異常をみとめていない。

レ線学的所見: 本症診断のもっとも重要な所見である。すなわち尿路では、単純撮影で骨盤部は多量の脂肪組織沈着のため radiolucency の増強がみられている。報告例でみると33例中25例にこの所見がみとめられている。腎盂撮影では過半数の症例に尿管の内方または外方への変位が、一部では尿管・膀胱移行部での狭窄がみとめられている。そして当然のことであるが、狭窄をしめた症例では上部尿路の拡張がみとめられている。尿道膀胱造影では、尿道は前立腺部が延長、変形をしめし、そして膀胱は、その正面像では底部は高位となり、形態では“inverted tear drop, banana, gourd shaped bladder”などと表現される奇妙な形に変形している。そして前立腺肥大症にみられる膀胱底部の変化とはまったく異質なものである。報告例では全例にこの変形がみとめられている。

つぎに逆行性大腸造影所見であるが、直腸からS状結腸にかけて管状に narrowing と straightening がみられ、そして retro-rectal space の増大により前方への変位をみとめ、tower-rectum と表現されている¹⁰⁾。報告例で本検査が施行されたすべての症例にこの所見がみとめられている。

組織学的所見: 切除された膀胱周囲組織の組織学的所見としては、lipoma, normal fat, mature fat, chronically inflamed fatty tissue などと診断され、すべて良性所見をしめている。しかし Long ら⁸⁾ は電顕的にも検索をすすめ、皮下組織などでは異常をみとめなかったが、膀胱周囲の脂肪組織からは5~10%に intracytoplasmic dense granular material がみられたと報告している。

成因: 本症の成因に関しては現在のところまったく不明である。多くの報告は原因不明の良性疾患であると記載されている。しかしこんにちまでの報告をみると、Engels⁵⁾ は慢性の下部尿路の炎症、ついで周囲との癒着がみられ、そして後腹膜腔に脂肪沈着をきたす

のでないかと推測している。一方 Malter¹⁰⁾ は、膀胱壁が intact state である点より Engels の意見には批判的であり、どちらかといえば obesity と関係があるのでないかと、Fogg¹¹⁾ の症例で5年後に 45 pound も体重増加をみ、同時にウログラムでも pelvic lipomatosis がはっきりしてきた症例を引用し、obesity には脂肪沈着をきたす潜在的な素質があって、pelvic lipomatosis はその局所的な表現でないだろうかとのべている。しかし Morettin¹²⁾ は obesity と関係があるならば実際にはさらに多くの症例を経験するはずであるとのべている。そして40歳以上の男性に多い点よりなにかホルモン機構が関係しているのではないかと推測している。しかし今日までの報告では、内分泌の異常を指摘しているのは Moss¹³⁾ の Cushing's disease に合併した症例のみである。Moss¹³⁾ は高血圧症の合併の多い点を強調し、なにか systemic な疾患でないかと推定している。Lucey⁹⁾ は本症が女性にみられないことより、精嚢腺に原因があるのでないかと想像しているが、しかし原因を明らかにすることはできなかつたとのべている。われわれの症例では左精嚢腺には造影剤の注入が不可能であったが、摘出した標本にはとくに所見をみとめなかつた。そして通過障害の原因は不明であった。Long⁸⁾ は非特異性の慢性炎症による、あたかも fibroblast の overproliferation によってケロイドが発生するように、炎症反応によるものでないかとのべながらも、さらに電顕的に intracytoplasmic dense granular material をみつけており、この osmiophilic body がなにを意味しているか興味ある点であるとのべているが、これが解明されることが一つの手掛りとなることができるかもしれないと考えられる。そのほか Cushing's disease に合併した症例¹³⁾、Dercum's disease に合併した症例¹⁵⁾、糖尿病に合併した症例⁶⁾ などがあるが、成因に関してはまったく不明である。

治療: レ線所見より本症と診断し、とくに加療されていない症例もある。多くの症例ではいちおう新生物を疑って手術をおこなっているが、骨盤内の多量の脂肪組織は除去できず biopsy あるいは exploration に終わっているようである。排尿障害に対しては TUR がおこなわれた症例もある¹⁶⁾。Carpenter⁴⁾ は脂肪組織を細心の注意のもとに除去することによって上部尿路の拡張を改善することができたと報告している。一方、尿路変向術を施行した症例がある。すなわち尿管下部への圧迫により通過障害がみられる症例に回腸導管、尿管皮膚瘻がおこなわれている^{6,8,9,14)}。そのほか放射線療法をおこなったが水腎症の改善がみられなかつた症例⁹⁾、食事療法によって体重減少を試みたが効果をみなかったという報告⁴⁾ などがある。

予後: 多くの報告は組織所見より成因不明ながらも良性疾患との記載が多い。Long⁸⁾ が電顕的検査でみいだした intracytoplasmic dense granular material の意味が解明されればすこしでも病態がはっきりし、予後もまた変る可能性があるのではないかと考えられる。

しかしこんにちまでの報告をみると、実際の子後を支配するのは尿路閉塞のいかんによると考えられる。実際に上部尿路通過障害のために尿路変向を必要とした症例^{4,6,8,9)}、また尿毒症で死亡した症例がある⁹⁾。Blau³⁾ もこの点より真に予後良好な疾患でないかと強調している。そして Carpenter⁴⁾ は現在までの報告をみて経過に二つのタイプがあるとのべている。すなわち、第一は比較的若い、stocky あるいは obese な健康な男子であるが、進行性に上部尿路通過障害をきたし、ついに尿毒症で死亡する危険性のある、将来ともじゅうぶん監視の必要とするグループと、第二は60歳以上の男子で、後日重大な障害をきたしていないグループと、この二つのグループに分けられるとのべている。Becker²⁾ の76歳男子の症例では9年間まったく変化をみていないが、一方尿路変向をおこなった症例、尿毒症で死亡した症例は50歳未満の症例である。この点を見ると確かに予後に相異があるようである。

鑑別診断: まず骨盤内腫瘍、骨盤内膿瘍があげられ、そのほか外傷による骨盤内血腫、retroperitoneal fibrosis, retroperitoneal xanthogranuloma, sclerosing lipogranuloma などがいちおう考慮されるべき疾患でないかと考える。

結 語

左下腹部痛を訴えた59歳男子にみられた pelvic lipomatosis の1例を報告するとともに、収集しえた欧米文献上の40例を加えて本症に対する若干の臨床的考察をおこなった。

文 献

- 1) Barry, J.M. et al. : Pelvic lipomatosis : A rare cause of suprapubic mass. *J. Urol.*, **109** : 592~594, 1973.
- 2) Becker, J.A. et al. : Pelvic lipomatosis, A consideration in the diagnosis of intrapubic neoplasms. *Arch. Surg.*, **100** : 94~96, 1970.
- 3) Blau, J.S. et al. : Pelvic lipomatosis, Consideration of the urinary tract complications.

- Arch. Surg., **105**: 498~500, 1972.
- 4) Carpenter, A. A. : Pelvic lipomatosis : successful surgical treatment. J. Urol., **110**: 397~399, 1973.
 - 5) Engels, E. P. : Sigmoid colon and urinary bladder in high fixation : Roentgen changes simulating pelvic tumor. Radiology., **72**: 419~422, 1959.
 - 6) Fogg, L. B. and Smyth, J. W. : Pelvic lipomatosis : A condition simulating pelvic neoplasm. Radiology., **90**: 558~564, 1968.
 - 7) Leuzinger, D. F. et al. : Case report of high fixation of bladder and sigmoid colon. J. Urol., **85**: 163~165, 1961.
 - 8) Long, W. W et al. : Perivesical lipomatosis. J. Urol., **109**: 238~241, 1973.
 - 9) Lucey, D. T. and Smith, M. J. V. : Pelvic lipomatosis. J. Urol., **105**: 341~345, 1971.
 - 10) Malter, I. J. and Omell, G. H. : Pelvic lipomatosis in a woman : A case report. Obstet. Gynec., **37**: 63~66, 1971.
 - 11) Mahlin, M. S. and Dovitz, D. W. : Perivesical lipomatosis. J. Urol., **100**: 720~722, 1968.
 - 12) Morettin, L. B. and Wilson, M : Pelvic lipomatosis. Amer. J. Roentgenol., **113**: 181~184, 1971.
 - 13) Moss, A. A. et al. : Pelvic lipomatosis : A roentgenographic diagnosis. Amer. J. Roentgenol., **115**: 411~419, 1972.
 - 14) Pepper, H. W. et al. : Pelvic lipomatosis causing urinary obstruction. Brit. J. Radiol. **44**: 313~315, 1971.
 - 15) Rosenberg, B. et al. : Dercum's disease with unusual retroperitoneal and paravesical fatty infiltration. Surgery., **54**: 451~455, 1963.
 - 16) Rosenthal, R. S. et al. : Pelvic lipomatosis : an emerging entity. Pensylv. Med., **76** : 41~42, 1973.

(1974年7月1日受付)