

後腹膜平滑筋肉腫術後 7 年目に腹壁再発をきたした 1 例

岸本 望¹, 高尾 徹也¹, 林 拓自², 山口唯一郎³
宮川 康¹, 辻村 晃¹, 野々村祝夫¹

¹大阪大学大学院医学系研究科器官制御外科学 (泌尿器科学)

²大阪府立急性期・総合医療センター泌尿器科, ³箕面市立病院泌尿器科

A CASE OF RETROPERITONEAL LEIOMYOSARCOMA
WITH ABDOMINAL WALL RECURRENCE 7 YEARS
AFTER THE FIRST OPERATION

Nozomu KISHIMOTO¹, Tetsuya TAKAO¹, Takuji HAYASHI², Yuichiro YAMAGUCHI³,
Yasushi MIYAGAWA¹, Akira TSUJIMURA¹ and Norio NONOMURA¹

¹The Department of Urology, Osaka University Graduate School of Medicine

²The Department of Urology, Osaka General Medical Center

³The Department of Urology, Minoh City Hospital

A 79-year-old man presented with a mass lesion under the left kidney that was revealed by abdominal ultrasonography. The retroperitoneal tumor was removed by transabdominal exploration. Histopathological diagnosis was a leiomyosarcoma. Seven years after the first operation, he presented with left flank pain. Computed tomography showed a mass lesion in the abdominal wall. Tumor resection was performed. The pathological diagnosis was recurrence of leiomyosarcoma. The patient remains free from disease recurrence 1 year after the second surgery.

(Hinyokika Kiyō 58 : 487-490, 2012)

Key words : Retroperitoneal leiomyosarcoma, Abdominal wall recurrence

緒 言

後腹膜原発の平滑筋肉腫は現在まで130例余りが報告されているが、その再発例の報告は比較的稀である。治療は外科的切除が原則であるが、再発の大部分は3年以内に起こるとの報告がある¹⁾。今回、われわれは初回手術後7年目に腹壁再発をきたした後腹膜平滑筋肉腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：79歳，男性

主訴：腹部腫瘍精査

既往歴：虫垂炎手術（30歳），腎結石（46歳），甲状腺機能亢進症（50歳），胆石（65歳）

家族歴：特記事項なし

現病歴：2002年7月，健診の腹部超音波検査で左腎下方に約5cmの腫瘍性病変を指摘。精査・加療目的に当科紹介受診となる。

入院時現症：身長161.5cm，体重70kg，血圧130/65mmHg，体温36.3℃，脈拍68bpm，腹部に腫瘍は触知せず，また圧痛も認めなかった。

血液検査所見：血算では軽度の貧血のほか異常所見認めず，血液生化学ではAST 31IU/l，ALP 105IU/l

1，LDH 291IU/lと軽度肝機能異常，LDH上昇を認めた。CEA，CA19-9などの腫瘍マーカーは正常範囲内であった。検尿所見では尿潜血陽性以外に異常所見認めなかった。

画像所見：腹部造影CTでは左腎静脈に接して内部不均一に造影される5cm大の腫瘍性病変を認めた（Fig. 1）。腹部MRIでは左腎臓前面に腫瘍性病変を認めた。

以上の所見より後腹膜腫瘍（鑑別としてleiomyosarcoma，神経原性腫瘍）の診断で2002年10月，後腹膜腫瘍摘除術を施行した。

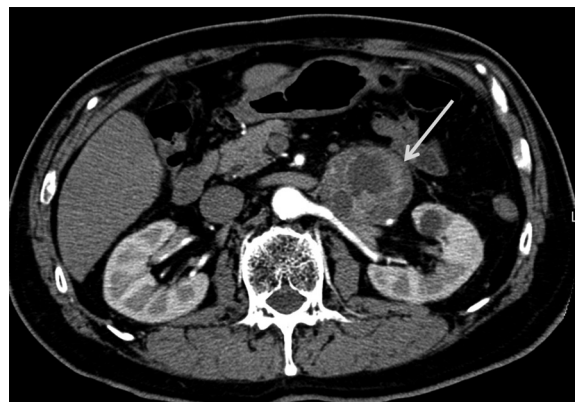


Fig. 1. CT showed a mass lesion of 5 cm in diameter near the left renal vein.

手術所見：腹部正中切開にて腹腔を展開。腫瘍は可動性に乏しく、腎血管との剥離が困難であったため左腎と腫瘍を一塊にして摘出した。手術時間は6時間35分、出血量は2,130 mlであった。

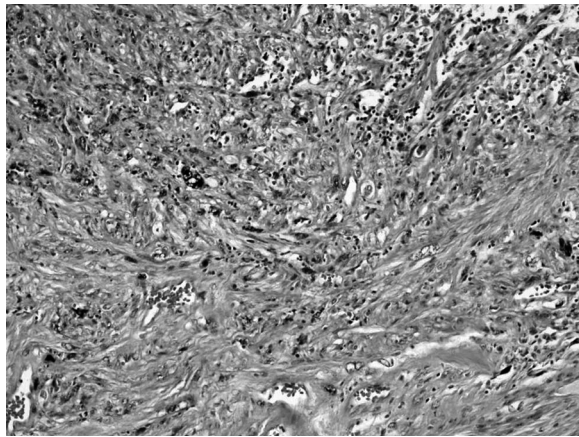


Fig. 2. Microscopic appearance of the tumor showed proliferation of infiltrated spindle shaped cells.



A



B

Fig. 3. (A) Enhanced CT showed a mass lesion 2 cm in diameter within the abdominal wall. (B) Tumor developed to 3.5 cm in diameter.

病理組織所見：HE 染色では紡錘形の腫瘍細胞が浸潤増生しており、一部では異型性の強い細胞も認めた (Fig. 2)。周囲との境界は比較的明瞭で腎臓への浸潤もなく切除断端は陰性であった。免疫染色にて α -SMA 染色、desmin 染色ともに陽性であった。以上より後腹膜平滑筋肉腫と診断した。

術後経過：治癒切除と判断し、以後3～4カ月ごとの腹部CTにて外来経過観察の方針とした。術後7年目の2009年10月に患者は左側腹部に疼痛を伴う腫瘍を触知し当院外来受診した。腹部CTでは左腹壁の筋層内に2 cm 大の辺縁が造影される腫瘍性病変を認めた (Fig. 3A)。12月のCTでは同部位の腫瘍は充実性になり、長径3.5 cm と増大を認め腹壁再発が疑われた (Fig. 3B)。

再入院後経過：後腹膜平滑筋肉腫再発疑いにて2010年1月左腹壁腫瘍切除術を施行した。内腹斜筋内に約6 cm 大の腫瘍を確認し、周囲との癒着は軽度であり腫瘍を摘出しえた。

摘出標本：境界は明瞭で、長径約6 cm の充実した腫瘍を認めた。

病理組織所見：HE 染色では多形性の強い細胞の充実性増殖を示した (Fig. 4)。また、核小体は明瞭で異型の大型核、多核など多彩な脱分化した細胞を認めた。 α -SMA 染色は少数の異型細胞に陽性を示し、後腹膜平滑筋肉腫再発として矛盾ないと考えられた。

術後1年を経過した現在再発なく外来経過観察中である。

考 察

後腹膜腫瘍は全腫瘍中の0.16～0.2%とされており、平滑筋肉腫はそのうち2～4%を占める比較的稀な疾患である²⁾。後腹膜平滑筋肉腫は二村ら³⁾の報告によると幅広い年齢での発症を認め、平均は57歳であった。性差は約1:2の割合で女性に多いとされ、これには女性ホルモンの関与が示唆されている⁴⁾。主訴は

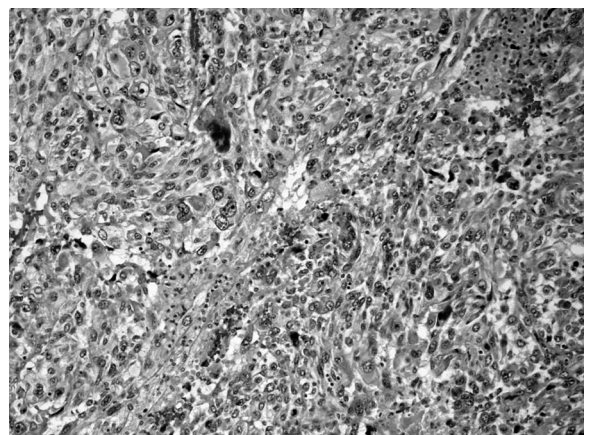


Fig. 4. Microscopic appearance of the tumor was extremely undifferentiated.

Table 1. Summary of late recurrence of retroperitoneal leiomyosarcoma in 8 cases

症例	報告者	報告年	初発時年齢	性別	初発時治療	再発までの期間 (年)	再発部位	再発時治療	予後 (診断後)
1	長石ら	1993	54	F	切除	8	肺, 肝臓, 皮下 (頭部)	化学療法 (肺), 切除 (皮下)	10年生存
2	岸ら	1996	64	F	切除	14	局所	切除	14年生存
3	神波ら	1997	67	F	切除+術前術後化学療法	7	局所	術前化学療法+切除	8年生存
4	中村ら	2000	54	M	切除	8	腎臓	切除	8年生存
5	甲斐ら	2001	57	M	切除	14	局所	切除	14年生存
6	広瀬ら	2001	77	F	切除+術後化学療法	7	局所	切除	7年生存
7	中村ら	2009	56	F	切除	9	皮下 (上腕), 肺, 臀部, 頭蓋骨	記載なし	9年生存
8	自験例	2012	79	M	切除	7	腹壁	切除	8年生存

腹部腫瘍触知が最も多く, 次いで腹痛の順となっている。しかしながらその解剖学的理由から特有の症状に乏しく, 腫瘍が増大してから診断されることが多い。比較的特徴的な所見としては, CT で筋肉に近い CT 値を示し壊死部分が多くみられること, MRI では T1 強調画像で低信号域, T2 強調画像で高信号を呈することなどがあげられるが, これらは平滑筋肉腫に特異的な所見ではなく画像からの診断は困難と考えられる。標準的治療は腫瘍の完全切除であるが進行例が多いため完全切除率は低く, 武田ら⁵⁾によれば47.8%にすぎないといわれている。また治療切除後も高率に局所再発をきたし⁶⁾, 肺, 肝臓, 骨などに転移することもある。一般に手術療法以外には有効な手段がなく化学療法や放射線療法は補助的手段と考えられているが, 神波ら⁷⁾は初発病巣, 再発病巣に対して CYVADIC 療法 (cyclophosphamide, vincristine, adriamycin, dacarbazine) を外科的切除に併用し, 良好な経過を得られた1例を報告している。また放射線治療が切除後の局所再発の予防に有効であるとする報告⁸⁾や完全摘出不能例の治療として有効性を示唆する報告⁹⁾もみられる。

初回手術から再発までの期間については, Wile ら¹⁾はほとんどが3年以内に再発し, 最長で6年, Rajani ら¹⁰⁾は平均23カ月で最長7年, Bautista ら¹¹⁾は平均46カ月で最長8年と報告している。自験例では初回手術から再発まで7年間無再発の経過をたどった。

後腹膜平滑筋肉腫で再発までの期間が5年以上経過した晩期再発例はわれわれの調べた限り自験例を加え本邦で8例報告されていた (Table 1)。初発時年齢は54~79歳, 平均63.2歳と比較的高齢であった。初発時の治療は全例で外科的切除が施行されており, 術前・術後に化学療法を施行された症例も認めた。再発までの期間は最長で14年であった。再発部位は8例のうち局所が4例であり, 定期的な経過観察がなされていなかった症例では多臓器再発を認めた症例もあった。再発時の治療は記載のあった7例全例で外科的切

除が施行されていた。しかし再発後の予後は長期の経過を報告しているものはなかった。また, 後腹膜平滑筋肉腫の再発部位について, これまでの報告では大半が局所再発であり腹壁への再発を認めた症例はわれわれの調べえる限り存在しなかった。さらに自験例で興味深かったのは2009年に腹壁再発を認めた後, 腫瘍は比較的急速な増大を認めた点である。初発時の病理組織所見では悪性度の高い組織所見は認めなかったが, 再発時の病理組織所見では脱分化した未分化な細胞が多く, より悪性度の高い腫瘍の再発によりその後比較的急速な進行を認めたのではないかと考えられた。

本症の予後規定因子については腫瘍の完全切除の可否との報告がある¹²⁾。しかし完全切除後であっても再発率の高さを考慮して切除後も定期的な経過観察が重要であると考えられる。Rossi ら¹²⁾は再発の早期発見のため, 切除後最初の2年間は3~6カ月ごとのCTもしくはMRI検査を, その後3年間は6カ月ごとの検査を推奨している。術後5年以上の follow up について明確に記載された報告はないが, 本疾患の最も効果的な治療法が腫瘍の早期発見, 完全切除であることを考慮すると術後5年以上も6カ月ごとの定期的な画像検査 (CT, MRI) が必要ではないだろうか。自験例においては定期的なCT (3~4カ月ごと) による術後経過観察で再発の早期発見が可能であった。今後ともCT, MRI 検査による厳重な経過観察が必要であると考えられた。

結 語

後腹膜平滑筋肉腫術後7年目に腹壁再発をきたした1例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告した。術後再発には早期発見が重要であり, CT, MRI を用いた厳重な経過観察が重要であると考えられる。再発例に対しても完全切除で予後のさらなる改善が期待できる可能性があると考えられた。

本論文の要旨は, 第213回日本泌尿器学会関西地方会にお

いて発表した.

文 献

- 1) Wile AG, Evans HL and Romsdahl MM: Leiomyosarcoma of soft tissue: a clinicopathologic study. *Cancer* **48**: 1022-1032, 1981
- 2) 永井盛太, 村林紘二, 赤坂義和: リンパ節転移を伴った後腹膜原発平滑筋肉腫の1例. *日臨外会誌* **63**: 3067-3071, 2002
- 3) 二村直樹, 松友将純, 丸井 努: 腸骨動静脈合併切除により摘出した後腹膜平滑筋肉腫の1例. *日外科系連会誌* **29**: 292-296, 2004
- 4) 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
- 5) 武田明芳, 炭山嘉伸, 長尾二郎: 後腹膜平滑筋肉腫の1例. *臨外* **38**: 695-699, 1983
- 6) Hill MA, Mera R and Levine EA: Leiomyosarcoma: a 45-year review at Charity Hospital, New Orleans. *Am Surg* **64**: 53-60, 1998
- 7) 神波大己, 川喜田睦司, 野口哲也, ほか: Neoadjuvant CYVADIC (cyclophosphamide, vincristine, adriamycin, dacarbazine) で治療した後腹膜平滑筋肉腫の1例. *泌尿紀要* **43**: 577-580, 1997
- 8) Stoeckle E, Coindre JM, Bonvalot S, et al.: Prognostic factors in retroperitoneal sarcoma. *Cancer* **92**: 359-368, 2001
- 9) Tepper JE, Suit HD, Wood WC, et al.: Radiation therapy of retroperitoneal soft tissue sarcomas. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* **10**: 825-830, 1984
- 10) Rajani B, Smith TA, Reith JD, et al.: Retroperitoneal leiomyosarcomas unassociated with the gastrointestinal tract: a clinicopathologic analysis of 17 cases. *Mod Pathol* **12**: 21-28, 1999
- 11) Bautista N, Su W and O'Connell TX: Retroperitoneal soft-tissue sarcomas: prognosis and treatment of primary and recurrent disease. *Am Surg* **66**: 832-836, 2000
- 12) Rossi CR, Nitti D, Foletto M, et al.: Management of primary sarcomas of the retroperitoneum. *Eur J Surg Oncol* **19**: 355-360, 1993

(Received on February 24, 2012)

(Accepted on May 18, 2012)