

馬蹄鉄腎に発生した腎血管筋脂肪腫の1例

澤崎 晴武, 吉川 武志, 瀧 洋二, 竹内 秀雄
公立豊岡病院泌尿器科

A CASE OF ANGIOMYOLIPOMA IN A HORSESHOE KIDNEY

Harutake SAWAZAKI, Takeshi YOSHIKAWA, Yoji TAKI and Hideo TAKEUCHI
The Department of Urology, Toyooka Hospital

The patient was 52 years old. She had undergone a breast cancer operation 4 years before this visit. On computed tomography (CT), a left renal tumor in a horseshoe kidney was incidentally pointed out. CT scan showed a 1.8-cm enhanced tumor in the upper pole of the left kidney. It was hyperechoic on ultrasonography. Since renal cell carcinoma could not be excluded preoperatively, left partial nephrectomy was performed. Pathological diagnosis was a renal angiomyolipoma. The incidence of horseshoe kidney is 1 in 400. The occurrence of hydronephrosis, infection and calculous disease is not uncommon. However, a case of angiomyolipoma simultaneously with a horseshoe kidney is very rare, this being the 7th case in the literature.

(Hinyokika Kiyo 53 : 557-559, 2007)

Key words : Angiomyolipoma, Horseshoe kidney

緒 言

馬蹄鉄腎の発生頻度は400人に1例であり、比較的良く経験する先天性腎奇形である。解剖学的特徴により感染や結石が合併することは良く知られているが、腎血管筋脂肪腫が発生することは非常に稀であり、現在まで海外を含め6例の報告があるのみである。今回われわれは、馬蹄鉄腎に合併した腎細胞癌を疑い腎部分切除術を施行したが、病理組織診断にて腎血管筋脂肪腫と判明した1例を経験したので若干の文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：52歳，女性。

主訴：なし

既往歴：48歳，乳癌にて手術（現在まで再発なし）

家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：2006年8月，乳癌術後観察中のCTにて左腎上極に腫瘤を指摘され当科紹介となる。

現症：特記すべき所見なし。

検査成績：血液一般，血液生化学検査，検尿を含め特記すべき所見なし。

画像検査：腫瘤は高エコーを示し，ドプラーにて腫瘤内の一部に血流を認めた。

腹部CTにて腎下極で融合する馬蹄鉄腎を認めた。左腎上極に径1.8cm大の背側に突出する腫瘤を認め，造影CTにて早期相で濃染し，後期相にてwash outされる像を呈した（Fig. 1）。



Fig. 1. Abdominal CT revealed an 1.8-cm enhanced solid tumor in left part of horseshoe kidney (arrow).

MRI：腫瘍はT1強調画像にて腎実質と等信号を，T2強調画像にて腎実質よりやや低信号を呈した。腫瘍内に脂肪成分を示す信号を認めなかった。

臨床経過：馬蹄鉄腎に発生した左腎腫瘍と診断，悪性腫瘍を否定できないため，2006年8月31日，左腎部分切除術を施行した。腰部斜切開にて後腹膜腔を展開した。腎周囲には明らかな癒着を認めなかった。左腎動脈を剥離，血管テープにて確保した。腎上極を剥離した後，マイクロターゼ®を使用し無阻血下に腎部分切除を施行した。

摘除標本：腫瘍は23×20×11mm大，断面は暗褐色充実性であった（Fig. 2）。

病理組織所見：腫瘍は，紡錘形，好酸性胞体を有する細胞が充実性に増殖し，血管および成熟脂肪細胞

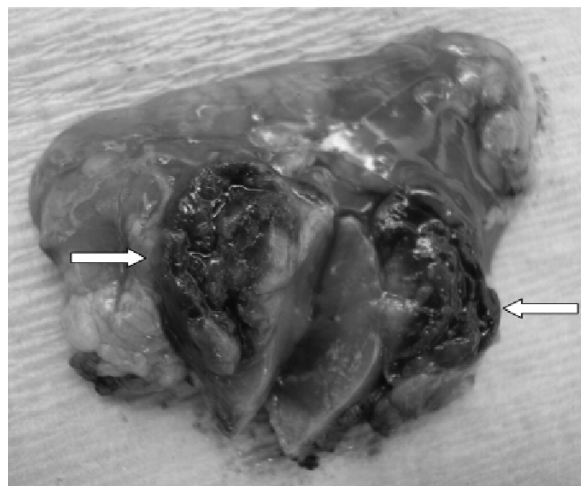


Fig. 2. Gross specimen showed a dark-brown mass having a friable cut surface (arrows).

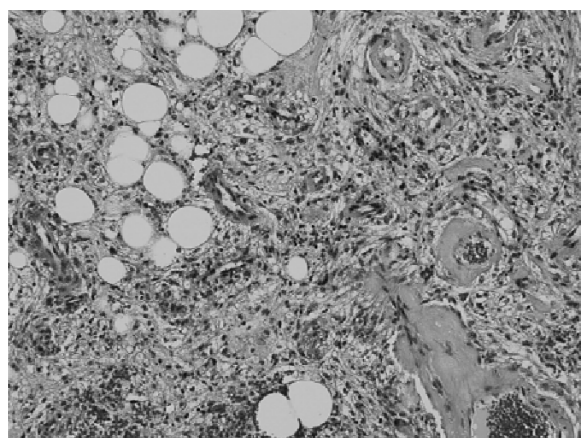


Fig. 3. Microscopically, blood vessels with variably thickened walls were associated with adipose tissue and smooth muscle.

が不規則に様々な割合で混在しており腎血管筋脂肪腫と診断した (Fig. 3).

術後経過：明らかな出血を認めず、総腎機能も 86 ml/min と良好であり術後 9 日目に退院した。

考 察

馬蹄鉄腎は、胎生第 4～7 週に左右後腎が正中を越えて融合したものである¹⁾。約 400 人に 1 人と比較的良く経験する先天性腎奇形であり²⁾、その男女比は

2:1 で男性によく発生するといわれている。95% が下極で融合しているが、一部では上極で融合している¹⁾。また、馬蹄鉄腎峡部や異常血管による尿路の圧迫のため水腎症を合併することが多く、上部尿路感染症や尿路結石を合併しやすいとされている³⁾。

馬蹄鉄腎に合併する腫瘍としては、1894 年に初めて Wilms 腫瘍の報告がされて以来⁴⁾、腎細胞癌、腎盂腫瘍、悪性リンパ腫、カルチノイド、肉腫などの報告がある⁵⁾。馬蹄鉄腎に発生した腎血管筋脂肪腫は、われわれの調べた限りでは文献上 6 例の報告があり⁶⁻¹¹⁾、自験例は 7 例目に相当する (Table 1)。発症年齢は 32～70 歳 (平均 49.5 歳) で、結節性硬化症の既往歴を 1 例に認めた。腫瘍の大きさは 2.2～15 cm (平均 7.08 cm)、治療法としては半腎切除術 3 例、腎部分切除術 2 例、塞栓術 2 例であった。馬蹄鉄腎における腎盂腫瘍の発生が正常腎のそれより 3～4 倍多く認められ、慢性的な尿路閉塞、尿路結石、尿路感染症の影響と考えられている¹²⁾が、馬蹄鉄腎と腎血管筋脂肪腫の因果関係に関してはまだ不明である。

馬蹄鉄腎の血管支配は多岐にわたる。Kolln ら¹³⁾は、馬蹄鉄腎の血管支配を、①左右 1 本ずつ大動脈から直接分岐する型 (15%)、②左右と峡部に数本ずつあり、いずれも大動脈から直接分岐する型 (65%)、③左右とも峡部にある数本のうち一部が総腸骨、内腸骨、下腸間膜動脈あるいは正中仙骨動脈から分岐する型 (20%) の 3 種類に分類している。自験例では②に相当した。

近年、画像診断の発達により無症状で偶然発見される腎腫瘍が増加している。腎に発生する充実性腫瘍では腎癌が最多であるが、鑑別を要する腎良性疾患としては腎血管筋脂肪腫、オンコサイトーマ、黄色肉芽腫性腎盂腎炎などが上げられ、鑑別困難な場合も存在する。McKiernan ら¹⁴⁾によれば悪性腫瘍を疑い腎部分切除術を施行した 292 例のうち約 23% が腎良性腫瘍であった。組織型はオンコサイトーマが 31 例、血管筋脂肪腫が 12 例、単純性嚢胞が 10 例、multilocular cyst が 3 例、cystic nephroma が 2 例などであった。一般的に画像上脂肪成分を認めた場合、腎血管筋脂肪腫と診断しておおむね問題ないが例外も存在する。淡明細胞

Table 1. Case of angiomyolipoma in a horseshoe kidney

No	Author	Age/sex	Tuberous sclerosis	Symptoms	Size (cm)	Therapy
1	Ries	53/M	(-)	Neck lymph node swelling	6	Heminephrectomy
2	Kyo	32/F	(+)	Flank pain	Unknown	Heminephrectomy
3	Karakiewicz	46/M	(-)	Lumbar pain	10	Embolization
4	Shimoda	70/F	(-)	None	2.2	Partial nephrectomy
5	Schacht	37/F	(-)	Abdominal pain	15	Heminephrectomy
6	Lee	57/M	(-)	None	7	Embolization
7	Our case	52/F	(-)	None	2.3	Partial nephrectomy

型腎癌は細胞内に脂肪顆粒を含んでいるといわれ MR の gradient-echo 法の out of phase ではその脂肪顆粒を検出してしまふことがある。その他の例外としては、腎癌の壊死部が脂肪変性を伴う場合 (石灰化を伴うことが多いが)、腫瘍の骨化により脂肪を含むようになった場合、腎周囲脂肪や腎洞脂肪を巻き込んだために腫瘍内に脂肪成分を認めるようになる場合などである^{15, 16)}。本症例では、腫瘍は高エコーを示し腎血管筋脂肪腫を疑わせる所見を得たが、造影 CT では早期層で造影効果を認め、後期層で wash out していた。また MRI 上も脂肪成分を示す信号を認めず腎細胞癌を否定できなかった。

治療に当たり、馬蹄鉄腎とくに峡部の血管分布はきわめて変異に富んでおり術前に詳細に把握しておく必要がある¹⁷⁾。本症例では腫瘍が腎上極に存在し、小径で背側面に突出し十分に経後腹膜的到達法による部分切除が可能と考えられた。マイクロターゼ®を使用し無阻血下に安全に部分切除を施行した。術後総腎機能も良好であり適切な治療法であったと考えられた。

結 語

今回われわれは、馬蹄鉄腎に発生した腎血管筋脂肪腫の 1 例を経験した。非常に稀であり、海外を含め本例は 7 例目に相当した。左腎上極の腫瘍に対して腎部分切除術を施行した。

文 献

- 1) 三品輝男: 尿路性器の先天異常疾患. ベッドサイド泌尿器科学, 診断・治療編. 吉田 修編. 第二版, pp 184-186, 南江堂, 東京, 1991
- 2) Glenn JF: Analysis of 51 patients with horseshoe kidney. *N Engl J Med* **261**: 684-687, 1959
- 3) 高木康治, 金井 茂: 馬蹄鉄腎に合併した腎細胞癌の 1 例. 泌尿紀要 **83**: 697-698, 1992
- 4) Hildebrand O: Beitrag zur Nierenchirurgie. *Dtsch Z Chir* **40**: 90, 1894
- 5) Kim TH: Renal cell carcinoma in a horseshoe kidney and preoperative superselective renal artery embolization: a case report. *Korean J Radiol* **6**: 200-203, 2005
- 6) Ries G, Allgayer B and Schmidt G: Solitary angiomyolipoma in a horseshoe kidney. *Rofo* **135**: 109-111, 1981
- 7) 京 昌弘, 幸田憲明, 藤本宜正, ほか: 馬蹄鉄腎を伴う嚢胞腎に発生した腎血管筋脂肪腫の 1 例. 泌尿紀要 **33**: 1416-1419, 1987
- 8) Karakiewicz PI, Herba MJ and Laplante M: A horseshoe kidney harboring large symptomatic renal angiomyolipoma with a false macroaneurysm. *Can J Urol* **4**: 447-449, 1997
- 9) 下田直彦, 森 達也, 松田博幸, ほか: 馬蹄鉄腎に合併した腎血管筋脂肪腫の 1 例. 旭川厚生病医誌 **IX**: 159-161, 1999
- 10) Schacht MJ, Sakowicz B, Rao MS, et al.: Intermittent abdominal pain in a patient with horseshoe kidney. *J Urol* **130**: 749, 1983
- 11) Lee S, Jang YB, Kang KP, et al.: A dilemma in treating angiomyolipoma in a horseshoe kidney. *Clin Nephrol* **66**: 220-222, 2006
- 12) Primrose A: Squamous cell carcinoma of the kidney. report of a case occurring in a horseshoe kidney complicated by a calculous pyonephrosis. *JAMA* **75**: 12, 1920
- 13) Kolln CP, Boatman DL, Schmidt JD, et al.: Horseshoe kidney: a review of 105 patients. *J Urol* **107**: 203-204, 1972
- 14) McKiernan J, Yossepowitch O, Kattan MW, et al.: Partial nephrectomy for renal cortical tumors: pathologic findings and impact on outcome. *Urology* **60**: 1003-1009, 2002
- 15) 瀧 知弘, 山田芳影, 本多靖明: 悪性腫瘍と鑑別が困難な腎病変. 臨泌 **58**: 923-927, 2004
- 16) 陣崎雅弘: 小腎腫瘍の鑑別診断. 泌尿器外科 **16**: 103-112, 2003
- 17) 西村健作, 矢澤浩治, 三浦秀信, ほか: 馬蹄鉄腎に発生した腎細胞癌の 1 例. 泌尿紀要 **43**: 279-281, 1997

(Received on December 20, 2006)

(Accepted on February 21, 2007)