

腎血管筋脂肪腫の1例

久留米大学医学部泌尿器科学教室 (主任：江藤耕作教授)

江 藤 耕 作
野 田 進 士
葉 師 寺 道 則
松 元 敏 彦

A CASE OF ANGIOMYOLIPOMA OF THE KIDNEY

Kōsaku ETOH, Shinshi NODA, Michinori YAKUSHIJI and Toshihiko MATSUMOTO

From the Department of Urology Kurume University School of Medicine, Kurume, Japan
(Director: Prof. K. Etoh)

A case of right renal angiomyolipoma in a 67-year-old female was reported.

She visited our clinic with chief complaint of right flank pain and mass. The removed specimen sized 14×6×4 cm, weighed 240 g and histopathological finding was renal angiomyolipoma.

This case was not complicated with Bourneville-Pringle phacomatosis.

We collected 52 cases of angiomyolipoma from Japanese literature including our case and its statistical study was done.

緒 言

腎腫瘍の中で良性腫瘍は、その経過中大部分は臨床症状の発現をみることがなく、病理解剖のさいに偶然発見されることがほとんどである。したがって臨床的頻度は比較的少ない。われわれは67歳女子に発生した腎血管筋脂肪腫を経験したのでその概略について述べ、あわせて本邦52例を集計したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：67歳，女子，家婦。

初 診：1974年10月22日。

主 訴：右側腹部痛，右側腹部腫瘍，意識喪失。

既往歴および家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1974年10月22日朝，突然右側腹部痛を覚え嘔気，嘔吐あり。安静にて症状は消失したが便意を催したため起立したとたん，昏倒し数分間意識を失った。安静にて平静にもどったが，右側腹部に腫瘍を触れ，精査のため即日入院す。

現 症：体格小，やせ型，喉結膜貧血高度，球結膜

に黄疸認めず。全身に発赤，発疹，結節等認めず。胸部聴打診にて異常所見認めず。左腎不触。右側腹部に約小児頭大の腫瘍を触知，境界比較的明瞭，表面平滑，圧痛軽度，弾性硬であった。その他リンパ節の腫脹等認めなかった。

検査成績：血液一般；赤血球数 330×10^4 ，白血球数 12,700，Ht 32%，Hb 10.2 g/dl。赤沈値；1時間 6，2時間 26 mm。肝機能；血清総蛋白 6.9 g/dl，A/G 1.19，Al 54.9%，G- α_1 7.6%，G- α_2 11.2%，G- β 13.0%，G- γ 13.1%，GOT 14単位，GPT 12単位，LDH 263単位，ALP 6.9単位，チモール 1.1単位，クンケル 8.2単位，コレステロール 137 mg/dl。血清電解質；Na 136 mEq/l，K 5.1 mEq/l，Cl 104 mEq/l，Ca 9.5 mg/dl。腎機能検査；BUN 13.0 mg/dl，クレアチニン 1.1 mg/dl，PSP 15分 36.0%，120分 95.0%，血清梅毒反応；陰性。血清免疫学的検査；ASLO 12単位，RA 陰性，CRP (+)。尿検査；黄褐色清澄，蛋白 (-)，潜血 (-)，沈渣に異常認めず。ECG；軽度の左室肥大所見を認める。

X線学的検査所見：胸部；左中肺野に石灰化像を認

めるほかは転移像などの陰影は認めない。腎、膀胱部単純撮影；結石様陰影その他の異常所見認めない。IVP；左腎盂，尿管に異常所見認めず。腫瘍の存在すると思われる右腎盂像において典型的な所見は認めず，腎盂像のみの所見では腫瘍の存在を指摘することはむずかしい症例であった（Fig. 1）。動脈撮影；左腎血管像にはとくに異常所見を認めず。右腎は下極外層より外下方に延びる新生血管の pooling 像を認め，右腎盂像にみられたごとく直接腎盂腎杯へ影響を与えない位置に腫瘍形成を認めた（Fig. 2）。

手術所見：1974年11月13日，全麻下，右腰部斜切開にて後腹膜腔へ達す。腫瘍は腎下極にあり表面凹凸不整，暗赤色を呈し，腎下極腫瘍部分の周囲に凝血塊を認め腫瘍外出血が臨床症状出現の直接の原因となったことが考えられた。周囲組織との癒着は腫瘍部分において高度であり，一部腹膜との癒着が強く剝離困難であった。腎上極，腎基部における剝離は比較的容易であり，腫瘍と一塊として腎摘出術を施行した。

摘出標本：大きさ 14×6×4 cm，重さ 240 g，腫瘍の表面は暗赤色を呈し，不整で硬度は弾性硬であった。剖面では腫瘍と腎との境界は比較的明瞭で，腫瘍の大部分は黄白色を呈し，ところどころに出血部を認めた（Fig. 3, 4）。

組織学的所見（H.E. 染色）：腫瘍は成熟した脂肪組織が著明で，その間に種々の大きさの血管がみられ，紡錘形細胞が不規則な束状を形成していた。腎実質と腫瘍との境界は比較的明瞭であった（Fig. 5）。

考 察

腎実質に発生する良性腫瘍は，皮質においては中胚葉性腫瘍（筋腫，脂肪腫，血管筋脂肪腫），腺腫があり，髄質においては線維腫が主である。これらは臨床症状を呈することはまれであり，その大きさは 1 cm 前後で剖検時に発見されることが多い¹⁴⁾。いずれにせよ上皮性，非上皮性を問わず臨床的にはまれであるが，ふつうみられるものとして線維腫が最も多く，次いで平滑筋腫，脂肪腫，これらの混在型，ときにこの混在型に血管成分が加わる，いわゆる血管筋脂肪腫などがある。混在型において腫瘍発生が果して真の腫瘍であるか，あるいは一種の過誤腫であるか問題であるが，結節性硬化症の合併率が高いことより一般には過誤腫とみなされている²⁾。細胞由来については明らかではないが筋腫では小血管壁の平滑筋より発生するといわれている。その他の成分の由来についてはまだ明らかではない。また中胚葉性腫瘍はときに腎被膜より発生をみることがある²⁾。

腎血管筋脂肪腫は Bourneville and Brissard (1880)⁴⁾ により Bourneville-Pringle phacomatosis (以降 B-P ph と略記する) の腎症状として初めて記載され，Chiari (1885)⁵⁾ は，これを過誤腫であると報告した。その後欧米では多くの報告例がみられ，Vasko (1965)⁶⁾ は 150 例を集計して報告している。本邦では小口 (1960)⁷⁾ の報告以来，野中ら (1969)⁸⁾ は 19 例，佐々木ら (1971)⁹⁾ は 17 例，水本ら (1971)¹⁰⁾ 30 例，重松ら (1973)¹¹⁾ 23 例，岩本ら (1973)¹²⁾ 49 例，池田ら (1974)¹³⁾ 30 例を集計している。われわれは，これらに 2 例¹⁴⁾ (自験例を含む) を加え 52 例を集計し若干の検討を加えてみた。

発生頻度：腎の血管筋脂肪腫は臨床症状を呈することは少なく，剖検時に発見されるものが大部分である。落合ら (1950)¹⁵⁾ は 2,000 例の剖検記録より，40 歳以上の日本人は，少なくとも 200 人に 1 人は，上皮性腫瘍を有するが，その大部分は臨床症状を呈するほどに成育しないと述べている。Apitz (1943)¹⁶⁾ は 4,309 例の剖検例中 827 例に腎の良性腫瘍を発見し，その中で 3 例のみが血管筋脂肪腫であったと報告している。すなわち剖検例中，かなりの高頻度に腎良性腫瘍はみられるが，本症の頻度は低いとされている。しかし最近では診断技術の発達に伴い，臨床的にも診断される機会が多くなり，すでに 50 例を越える報告をみるに至っており，本症に対する認識も高まっているものと思われる。

年齢：Allen et al. (1965)¹⁷⁾ によると B-P ph 合併例においては比較的若年者に多く，単独例には高齢者が多いとされている。われわれの集計した 52 例においては，30 歳台が 21 例 (40.4%) と高率を占め，次いで 20 歳台，40 歳台が各 11 例 (各 21.1%) と若中年層が大多数で，50 歳台 1 例 (1.9%)，60 歳台 3 例 (5.7%) で高齢者は少数であった。とくに年齢と B-P ph 合併との間に傾向はみられなかった (Table 1)。

Table 1. 年 齢

年 齢	例 数
0 ~ 9	0
10 ~ 19	5
20 ~ 29	11
30 ~ 39	21
40 ~ 49	11
50 ~ 59	1
60 ~	3
計	52

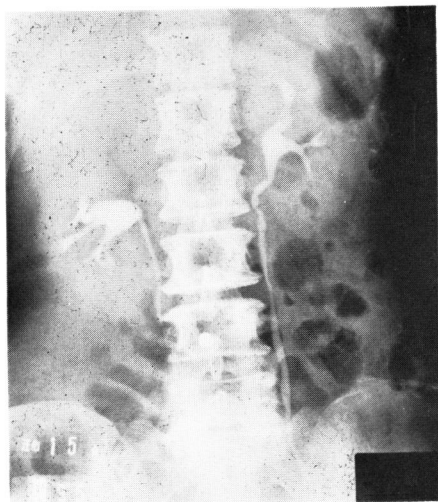


Fig. 1



Fig. 2

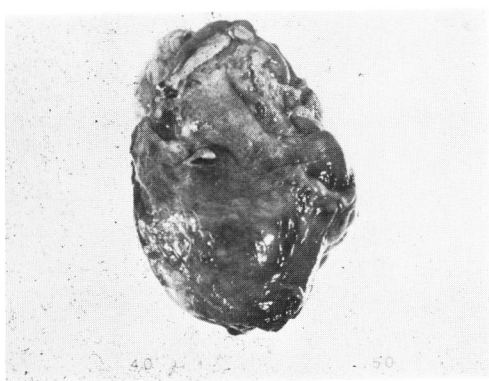


Fig. 3

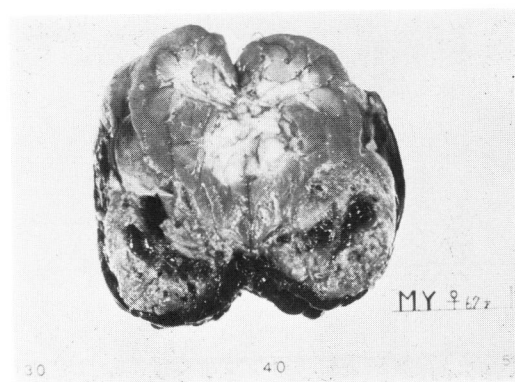


Fig. 4

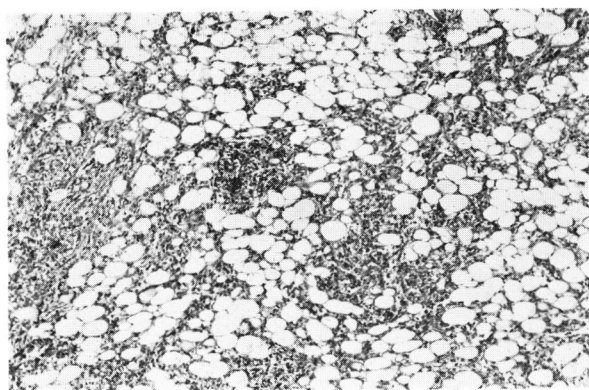


Fig. 5

性別：性別における発生頻度は、欧米報告例¹⁸⁻²⁰⁾では女子に多く発生しているが、われわれの集計においても女子39例(75%)、男子13例(25%)で、女子に圧倒的に多く、明らかに差異が認められた(Table 2)。

Table 2. 性別

性別	例数
男	13
女	39
計	52

患側：患側をみると左24例、右21例とくに左右差を認めなかった。両側発生は5例に認められた。B-P ph に合併した場合、かなり高率に両側腎に発生するといわれるが^{17,18)}、両側発生5例中4例がB-P ph を合併していた。すなわちB-P ph に合併した場合、両側性を疑って対処する必要がある(Table 3)。

Table 3. 患側

患側	例数
左	24
右	21
両	5
不明	2
計	52

臨床症状：多くは剖検時に発生されるごとく特有の症状はないが、われわれの集計例でおもな臨床症状をみると、腹部痛26例、腹部痛瘤20例、発熱6例、血尿5例、ショック4例である(Table 4)。すなわち腹部痛、腹部腫瘍がおもな症状であると思われるが、このような症状ではけっして特有なものとはいえず、たとえ臨床症状をきたしても本症の診断は困難であることが推察される。Campbell (1963)²¹⁾は、腹部激痛、失神、ショックを重要な症状であると述べている。腫瘍内破裂による大出血のためショック状態を呈した報告例もみられ^{22,23)}、われわれの症例も右側腹部痛をき

Table 4. 臨床症状

症状	例数
腹部痛	26
腹部腫瘍	20
発熱	6
血尿	5
ショック	4

たしたのちに急に意識喪失し右側腹部に著明な腫瘍を触知されたものであり、手術時に腫瘍外出血を認めている。

診断：臨床症状を呈するものでB-P ph を合併している症例では本症の術前診断も可能と思われるが、単独例では他の悪性腫瘍との鑑別は困難である。Allenら(1965)¹⁷⁾は腎周囲組織は水分含有が比較的多いのに対して本症では脂肪成分に富むためレ線透過性が異なってみられることを指摘し、Adelman (1965)²⁴⁾は、本症は実質内よりも腎外層周囲組織に向かって成育する傾向を有するため腎盂腎杯に対する影響は比較的小ないと述べている。われわれの症例において、レ線透過性の差異は指摘できるほどの所見は認めなかった。また腎盂造影においては、腎盂腎杯に腫瘍を思わせる典型的な所見は認めなかった。いずれにしても術前診断はかなり困難なものであり、最終的には病理組織学的診断によるほかはない。

治療：われわれの集計では43例に摘出がおこなわれ部分切除2例、生検5例、不明2例であった(Table 5)。すなわち圧倒的多数に対して腎摘出術が施行されているわけである。本症は良性腫瘍であり、できうることならば保存的療法ないし部分切除が望ましい。しかし術前診断が決定的におこなわれない現在、摘出が大多数に施行されていることはやむを得ないことではあろう。われわれの症例も発症経過から本症の疑いのある程度はもっていたが、年齢的なもの、全身状態、対側腎形態機能、そして何よりも確診を得ることができなかったため腎摘出術にふみきったものである。村橋ら(1970)²⁵⁾はB-P ph に合併した両側発生の症例に対して一側に部分切除術を施行し、対側にはRadon seed implantation を施行し、良好な経過を得たと報告しているが興味あるものである。しかしたとえ本症であっても必ずしもすべて良好な経過をたどるものとはいえず、大腫瘍を形成し、大出血、腎破裂の可能性もあり、極稀ではあるが悪性変化をみたとの報告²⁶⁻²⁸⁾も散見され、じゅうぶんな観察は必要であらう。

Table 5. 治療法

治療法	例数
摘出	43
部分切除	2
生検	5
不明	2
計	52

B-P ph との合併について：われわれの集計では22

例とかなり高率に合併がみられる。女子13例，男子9例と女子に多いが，性別に頻度をみると，男子は13例中9例（69.2%）の高率に認められるが，女子は不明4例を除き35例中13例（37.1%）と，男子に比してかなり低い（Table 6）。過誤腫はB-P phに合併して出現するのみではなく，単独に出現することも多くその場合中年の女子に好発することが特徴であるともいわれる¹⁸⁻²⁰⁾，われわれの集計でもその傾向にあると思われる。すなわちB-P phと合併する頻度はかなり高いが好発する女子においては案外低く，男子においては少数例ではあるがB-P phとの合併率が高く，男子のB-P phをみた場合，本症を念頭におき対処すれば術前診断はかなり期待できるものと思われる。

Table 6. B-P ph 合併

性 別	(+)	(-)	不 明	計
男	9	4	0	13
女	13	22	4	39
計	22	26	4	52

結 語

1. 右側腹部痛，右側腹部腫瘤形成，意識喪失をきたした67歳女子の腎血管筋脂肪腫の1例を報告した。
2. 腎血管筋脂肪腫の本邦例52症例を集計し若干の考察をおこなった。

なお，本論文の要旨は第49回日本泌尿器科学会鹿児島地方会において発表した。

文 献

- 1) Reese, A. J. and Winstanley, D. P.: Brit. J. Cancer., **12**: 527, 1958.
- 2) Evans, R. W.: Histological appearance of tumor 2nd edit., p. 1133, Livingstone, Baltimore, 1966.
- 3) Colvin, S. H.: J. Urol., **48**: 585, 1942.

- 4) Bourneville, D. M. and Brissard, E.: 6) より引用.
- 5) Chiari.: 6) より引用.
- 6) Vasko, J. S. et al.: Ann. Surg. **161**: 577, 1965.
- 7) 小口：日泌尿会誌，**51**：426, 1960.
- 8) 野中・ほか：日泌尿会誌，**60**：50, 1969.
- 9) 佐々木・ほか：日泌尿会誌，**62**：99, 1971.
- 10) 水本・ほか：泌尿紀要，**17**：236, 1971.
- 11) 重松・ほか：西日泌尿，**35**：210, 1973.
- 12) 岩本・ほか：西日泌尿，**35**：845, 1973.
- 13) 池田・ほか：臨泌，**28**：707, 1974.
- 14) 藤田：日泌尿会誌，**65**：124, 1974.
- 15) 落合・ほか：日泌尿会誌，**41**：86, 1950.
- 16) Apitz, K.: Arch. Path. Anat., **311**: 306, 1943.
- 17) Allen, T. D. and Risk, W.: J. Urol., **94**: 203, 1965.
- 18) McCullough, D. L. et al.: J. Urol., **105**: 32, 1971.
- 19) Klapport, H. J. et al.: Arch. Path., **67**: 400, 1951.
- 20) Price, E. G. Jr. and Mostofi, F. K.: Cancer., **18**: 761, 1965.
- 21) Campbell, M.: Urology, Philadelphia, W. B. Sanders Company, 2nd edit., 1963.
- 22) 田中・ほか：癌の臨床，**7**：269, 1963.
- 23) 大沼・ほか：外科，**34**：754, 1972.
- 24) Adelman, B. P.: Amer. J. Roentgenol., **95**: 403, 1965.
- 25) 村橋・ほか：日泌尿会誌，**61**：836, 1970.
- 26) 杉村：泌尿紀要，**10**：200, 1964.
- 27) Berg, J. W.: Cancer., **8**: 759, 1955.
- 28) Hartveit, F. and Halleraker, B.: Acta. Path. Microbiol. Scand., **49**: 329, 1960.

(1974年12月16日受付)