

腎平滑筋肉腫の1例

神戸大学医学部泌尿器科学教室（主任：守殿貞夫教授）

郷 司 和 男 ・ 中 西 建 夫

岡 伸 俊 ・ 中 野 康 治

岡 田 弘 ・ 浜 見 学

守 殿 貞 夫

国立神戸病院（院長 石神襄次）

石 神 襄 次

A CASE OF LEIOMYOSARCOMA OF THE KIDNEY

Kazuo GOHJI, Tateo NAKANISHI, Nobutoshi OKA,

Yasuji NAKANO, Hiroshi OKADA,

Gaku HAMAMI and Sadao KAMIDONO

*From the Department of Urology, Faculty of Medicine, Kobe University**(Director: Prof. S. Kamidono)*

Joji ISHIGAMI

*From Kobe National Hospital**(Chief: Dr. J. Ishigami)*

Leiomyosarcoma of the left kidney seen in a 58-year-old man is reported. On April 10, 1982, he complained of left flank pain. He visited our hospital and left solitary renal cyst was suspected. He had been treated as an outpatient, but left flank pain became exacerbated.

On May 18, he was admitted to our hospital. On June 7, radical nephrectomy was done under the diagnosis of left renal cell carcinoma. At operation, the tumor invaded directory to the psoas muscle and abdominal wall, and could not be completely resected. Pathological diagnosis was renal cell carcinoma with sarcomatoid change. On July 1, he was discharged from the hospital.

In December, left flank distention appeared and back pain became exacerbated. On February 8, 1983, he was readmitted to our hospital. Low density area was found in left psoas muscle by CT scanning and recurrence of renal cell carcinoma was suspected. α -Interferon therapy had been done, but tumor increased remarkably and caused ileus. He died on June 14, 1983.

The autopsy revealed a child head-sized cystic tumor in the upper retroperitoneal space, a 5×5×5 cm metastasis of the left lobe of the liver, a 3×3×4 cm tumor to the left upper lobe with cavity formation and direct invasion into the spleen, diaphragm and gastric serosa. These metastatic lesions were leiomyosarcoma. Retrospectively, the primary tumor of kidney revealed primary leiomyosarcoma of kidney.

Key words: Leiomyosarcoma, Kidney

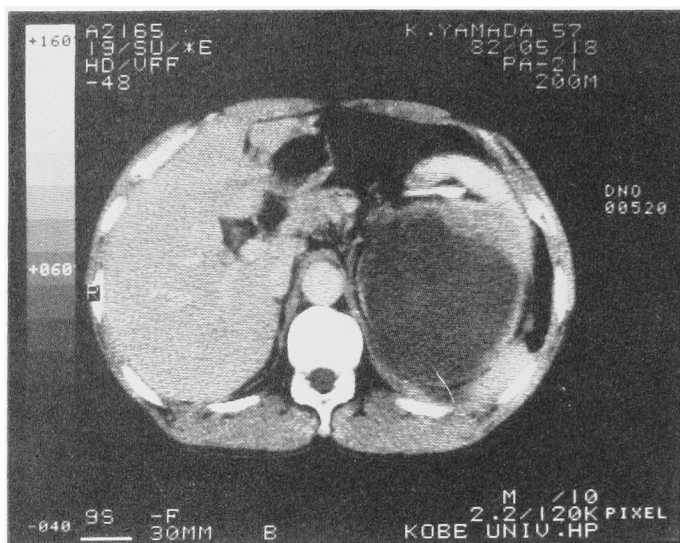


Fig. 1. 初回入院時の腎部 CT 像：左腎下極に内部が low density の小児頭大腫瘤を認める

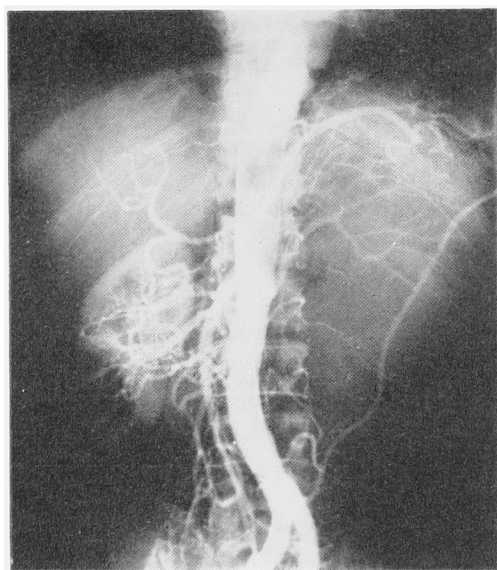


Fig. 2. 腹部大動脈造影像：左腎動脈は伸展され上方へ圧排されているが、血管新生、腫瘍濃染は認められない

はじめに

腎悪性腫瘍の大部分は実質に由来する腺癌である。腎原発の肉腫として、平滑筋肉腫、横紋筋肉腫、血管肉腫、繊維肉腫及び脂肪肉腫などがあるが、いずれも比較的まれな疾患である。今回われわれは、腎細胞癌（肉腫型）と鑑別困難であった腎平滑筋肉腫の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：58歳，男子，建設業

主訴：左腰痛

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1982年4月初旬頃より左腰部に鈍痛を自覚。1982年4月27日当院泌尿器科受診し，left solitary renal cystの疑いで同年5月18日泌尿器科へ入院となった。体重減少，血尿及び発熱などは認めなかった。

入院時現症：身長 155 cm，体重 44 kg と体格小，栄養中等度，血圧 136/90 mmHg，胸部には理学所見上異常を認めないが腹部触診にて左腎を3横指触知した。

一般検査成績：血液一般；赤血球 $372 \times 10^4/\text{mm}^3$ ヘモグロビン 13.2 g/dl，白血球 10,100/mm³，血小板 $16.9 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，白血球分画異常なし。

血液生化学：GOT 25 IU/l，GPT 29 IU/l，T-Bil 0.4 g/dl，LDH 309 IU/l，Al-P 73 IU/l，r-GTP 23 IU/l，BUN 18 mg/dl，Cr 1.4 mg/l，Na 140 mEq/l，K 3.9 mEq/l，Cl 100 mEq/l，Ca 9.4 mg/dl，P 3.4 mg/dl，T. P 7.3 g/dl，Alb 4.0 g/dl，FBS 106 mg/dl，血沈1時間 23 mm，2時間 51 mm。

尿所見：蛋白（－），糖（－），赤血球 2～3/HPF 白血球 0～1/HPF

X線検査所見：胸部単純写真には異常なし。腎膀胱部単純写真では，左腎陰影の腫大を認めた。排泄性腎盂造影では，右腎は描出良好であるが左腎は造影され

ない。逆行性腎盂造影では、左下腎盂、腎杯に陰影欠損を認めるとともに、上中腎杯の上方への圧排所見を認め、その壁は一部不整で腎実質が部分的に内腔に突出しており腫瘍の存在を疑わせた (Fig. 1)。腹部大動脈造影で、左腎動脈は伸展、上方に圧排されていたが、血管新生及び腫瘍濃染などは認められなかった (Fig. 2)。以上の所見から、典型的な腎細胞癌の所見とは異なっていたが、腎細胞癌を疑って、1983年6月7日経腹膜的左腎摘除術を施行した。

手術所見：左腎に小児頭大の軟かい腫瘍がみられ、

その表面は凹凸不整であった。腫瘍の下極の一部に硬結を触知した。下行結腸は左外側に圧排されており、腫瘍は Gerota 筋膜を越え、左腹壁、方形筋、脾臓へ浸潤していたので、可及的左腎摘除を施行した。

摘除腎組織：左腎は、大きさ $18 \times 20 \times 12$ cm 重量 1,370 g であり、腎上半分は cyst を形成しその内容は血性混濁液約 700 ml であった。壁の前壁から下壁にかけて淡黄色のやや硬い腫瘍病巣が認められた。

病理組織所見：紡錘型あるいは卵円形核を有する異型の著しい悪性細胞が、束状あるいは渦巻状に配列し

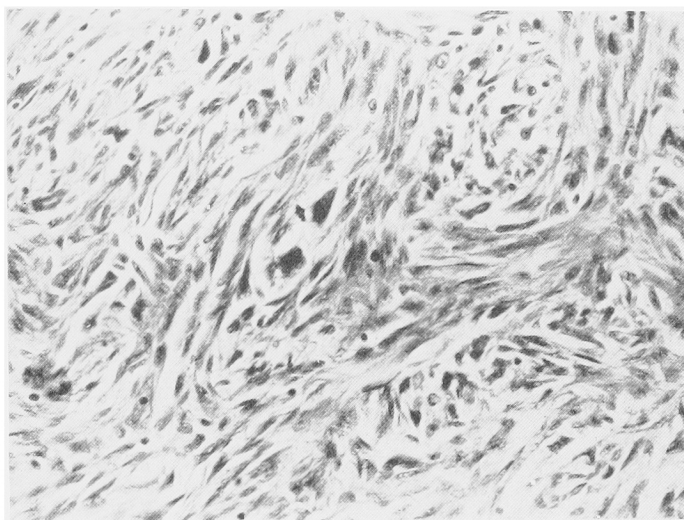


Fig. 3. 摘出腫瘍の組織像：紡錘型の核を有する悪性細胞が柵状に配列している ($\times 60$ H.E. 染色)

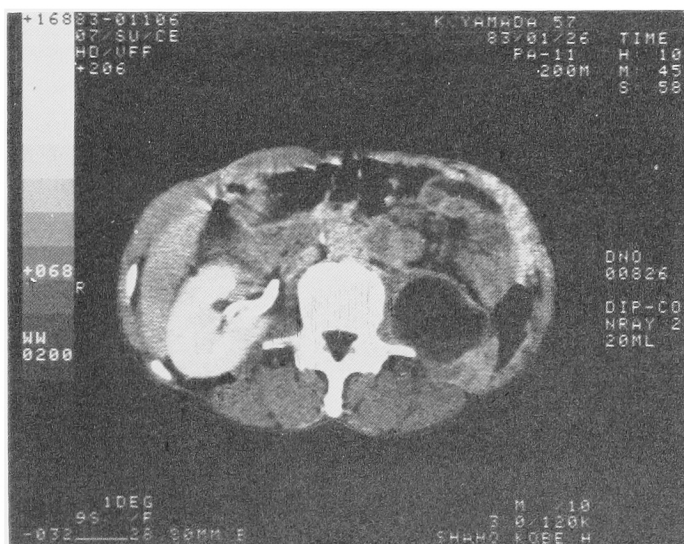


Fig. 4. 再発時の腎部 CT 像：左方形筋内に内部が low density な cyst を認める

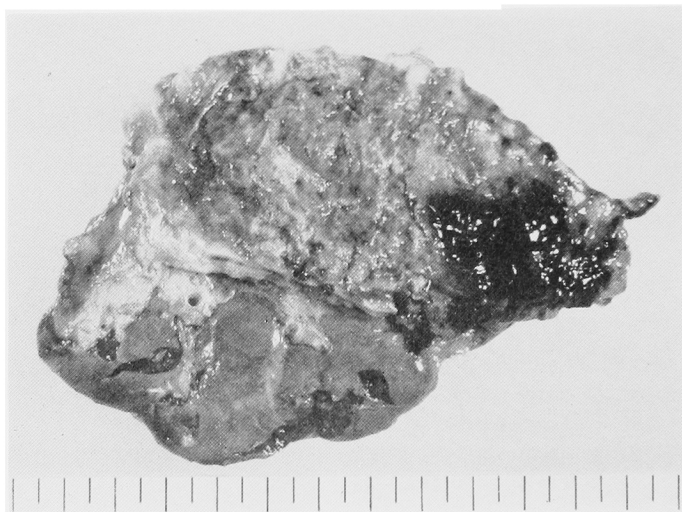
ている (Fig. 3). これらの腫瘍細胞は嚢胞壁から腎実質内へ浸潤していた。以上より腎細胞癌 (肉腫型) と診断された。

術後経過：術後経過良好で、1983年7月に退院し、外来で経過観察していたが、同年12月に左側腹部痛を再度自覚し、腹部 CT で左方形筋肉に内部が均一な low density を示す部分を認めた (Fig. 4)。試験穿刺を試みたところ、その内容は血性液で悪性細胞が認められ腎細胞癌の再発と思われたので β -インターフェロンの全身投与 (総量 3×10^7 U) 及び cyst 内注入 (総量 3×10^6 U) を試みたが効果なく腫瘍の浸潤によるイレウスを合併し悪液質で死亡した。

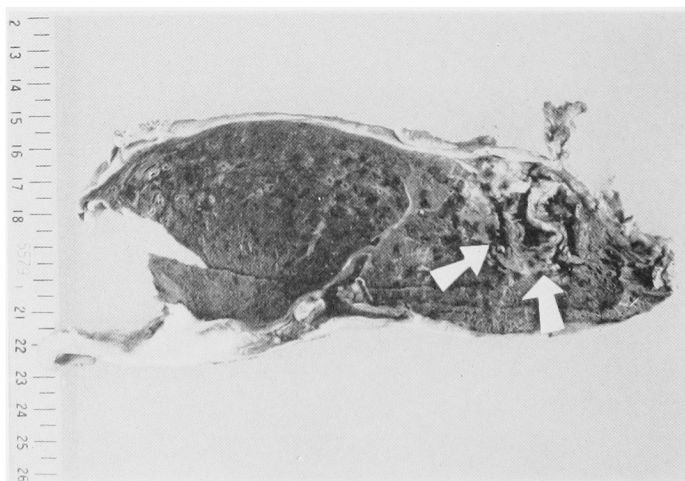
剖検所見：死後4時間で行われた。患者の栄養状態

は不良で腹部は軽度膨隆していた。眼球結膜、皮膚に黄染を認めない。腹腔内は淡黄色透明の腹水約 500 ml を認め、後腹膜腔には、小児頭大で内容が血性液の cystic な腫瘍が存在し、横行結腸、空回腸、脾、胃、肝左葉及び左横隔膜へ浸潤していた (Fig. 5a)。また、左肺上葉に大きさ $3 \times 3 \times 4$ cm の cystic な転移巣を認めた (Fig. 5b)。骨転移は左第2、3、4肋骨にみられたが、リンパ節転移は認められなかった。

病理組織所見：両端が鈍で棍棒状核を有する腫瘍細胞が、互いに交錯して束状に配列していた。所々に、大きく bizzar な核を有する巨細胞が出現し、核分裂像も散見された (Fig. 6)。アザン染色では、腫瘍細胞は紫赤色に染まり渡銀染色で細胞束横断面で比較的大



a



b

Fig. 5a. 後腹膜腔の腫瘍：出血を伴った腫瘍が脾に浸潤している
5b. 左肺断面：上葉に cystic な転移巣 (矢印) を認める

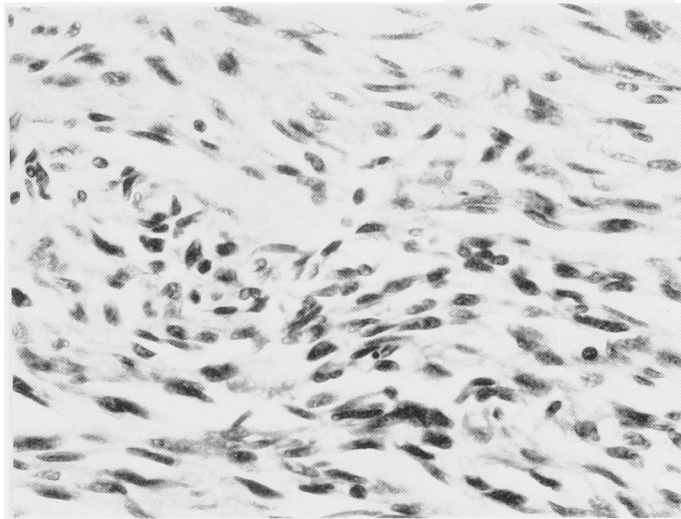


Fig. 6. 後腹膜腔腫瘍の組織像：棍棒状核を有する紡錘型の腫瘍細胞が束状に配列している。（×60, H.E. 染色）

Table 1. 1981年以降の本邦報告例

No	報告者	年齢	性別	患側	腫瘤	疼痛	血尿	他の症状	重量(g)	囊胞形成	動脈造影	治療	転帰
30	高橋ら 10) (1981)	65	男	左	+	-	-	-	1100	-	A-V fistula	化学療法 放射線 腎摘	1年10ヵ月 生存中
31	丸山ら (1982)	61	女	左	+	-	+	漆喰腎	不明	不明	中心 hypovascular 辺縁 hypervascular	腎摘	不明
32	山田ら (1982)	64	女	左	+	+	-	-	1500	不明	hypovascular	腎摘	2.5ヵ月後 死亡
33	若林ら 11) (1982)	51	男	左	-	-	-	亀頭炎	不明	不明	hypervascular	腎摘	9ヵ月 生存中
34	石井ら 12) (1982)	58	男	左	-	+	-	左精索 静脈瘤	不明	-	not hypovascular	放射線 化学療法	6ヵ月後 死亡
35	小田島ら 13) (1982)	51	男	左	-	-	-	陰茎癌	不明	+	hypovascular	腎摘	100日 生存中
36	沼里ら (1982)	37	男	右	-	-	-	浮腫蛋白尿 微熱	450	不明	hypervascular	腎摘 化学療法	2年 生存中
37	吉原ら (1982)	57	男	右	+	-	-	-	246	不明	不明	腎摘	30日後 死亡
38	西淵 (1983)	60	男	左	+	+	-	発熱	不明	不明	不明	腎摘 化学療法	不明
39	鈴木ら 9) (1984)	35	男	右	+	-	-	体重減少	240	-	hypervascular	腎摘 化学療法	10ヵ月 生存中
40	自験例 (1984)	56	男	左	-	+	-	-	1370	+	hypovascular	腎摘	1年2ヵ月後 死亡

い好銀線維が個々の細胞をとり囲む“箱入り像”がみられた。PTAH 染色では、胞体内に明らかな横紋を証明しえなかった。本例は、手術的に摘除された腎腫瘍組織像からは、明らかな平滑筋肉腫とは言い難いが、腫瘍が肉眼的に cystic であったこと、及び、剖検時の転移部腫瘍組織像から、retrospective に腎原発平滑筋肉腫と診断された。

考 察

腎の悪性腫瘍のうち腎肉腫はまれな疾患であり、その頻度は全腎悪性腫瘍の約3%程度である¹⁾。腎平滑

肉腫は、本邦において1957年に南ら²⁾が報告して以来われわれの検索しえた限りでは自験例を含めて40例の報告がある (Table 1)。その罹患年齢は18歳から68歳にわたっており平均年齢は43.4歳であった。性比は、1:1.2と女性にやや多くみられる。症状は、側腹部腫瘍24例 (60%)、疼痛23例 (57.5%)、発熱13例 (32.5%)、肉眼的血尿9例 (22.5%)、などである。本腫瘍の発生部位として、腎被膜、腎盂腎杯、腎血管壁の平滑筋が考えられており、このうち腎被膜から発生するものが最も多いとされる³⁾。しかし、自験例ではその起源を明らかにすることができなかった。

術前診断は臨床症状、排泄性腎盂造影、血管造影及び CT 造影などにより行われているが、その多くは腎腫瘍と診断されており、術前に腎肉腫と確認を得ることは難しい。本疾患は、血管造影にて腫瘍辺縁部の血管が蛇行し、一部に pooling sign を認め、内部は hypervascularity であったと報告するものが多く、また Thomas ら²⁾によれば、grape-like arterial aneurysm が特徴とされる。しかしこれらの所見は他の腎腫瘍でも類似した所見を呈する⁴⁻⁶⁾ので、血管造影も肉腫診断の補助的な役目を果たすにすぎない。また陳ら⁸⁾は、1977年までの報告例26例を検討し、摘除腎組織に腫瘍内出血を23例中14例に認め、cyst 形成を22例中6例に認めたと述べている。自験例も cystic な腫瘍であった。確定診断は組織診によらねばならないが、血管造影で hypervascularity を示すことが少ないこと、CT で腫瘍内部の出血、壊死がみられることが多いこと、及び血尿の頻度が少ないことなどを考慮に入れば、正しい術前診断も可能と思われる。

組織学的に鑑別すべきものとして、①線維肉腫、②横紋筋肉腫、③組織球腫、④神経芽腫、⑤マラコブライキア、⑥黄色肉芽腫性腎盂腎炎、⑦転移性腎腫瘍などが考えられる。自験例では転移部腫瘍の細胞核が棍棒状であること、PAS 染色で胞体内に陽性顆粒を持つこと、PTAH 染色では胞体内に横紋が証明されないこと、及び渡銀染色で比較的太い好銀線維が個々の細胞をとり囲む“箱入り像”を呈することで、他腫瘍と区別可能であった。しかし、摘除左腎腫瘍の特徴的な所見は明らかでなく、腎細胞癌（肉腫癌）と区別困難であった。

治療は、40例中部分切除1例を含め37例に外科的治療（腎摘）が行われている。更に、化学療法を併用しているもの13例、放射線療法併用4例、両者併用5例である。一般に肉腫は放射線感受性が低いが、Helmbrecht ら¹⁾は、腎摘除術とリンパ節郭清に加え術前、術後の放射線照射及び adriamycin, actinomycin-D, などによる化学療法の3者を組みあわせた“triple therapy”を施行し、大腿骨、骨盤、脊椎、鎖骨及び肺への転移を克服し2年半生存中の症例を報告している。しかし、現在のところ手術療法以外の有用な治療方針は確立されていない。

転移は、血行性およびリンパ行性におこることが多いといわれている。臓器別転移頻度は、肺、肝、リンパ節、骨の順に多くみられる。自験例では、局所浸潤が主であり、左後腹膜腔に小児頭大で内容が血性液の cystic な腫瘍を認め、胃、横行結腸、空回腸、脾、左横隔膜、肝左葉、肋骨に直接浸潤していたが、リンパ

節転移はみられなかった。

本症の予後は不良で、鈴木ら⁹⁾によれば、転帰の明らかな32例のうち生存22例、死亡10例であり、長期観察例は少ないが、10カ月実測生存率は66.4%であったと述べている。このように予後が悪いのは、症状出現が遅いため初診時既に遠隔転移のみられるものが多いことや、本疾患自体の悪性度が高いためと思われる。当然のことながら、腫瘍が小さく限局性で被膜を有するもの予後は比較的良く¹⁾近接臓器に直接浸潤したものの予後は不良である。自験例では手術時、腰筋に浸潤しているのが認められ、初診より1年2カ月後に死亡した。

結 語

左腰痛を主訴とする58歳の男性にみられた腎平滑筋肉腫の1例を若干の文献的考察を加えて報告した。本例は当初、腎細胞癌肉腫型と診断されたが、剖検時の転移巣の組織所見から retrospective に腎平滑筋肉腫と確定診断された。まれな疾患ではあるが、今後本疾患を念頭に置き診断治療にあたるべきであると思われる。

文 献

- 1) Helmbrecht LJ and Cosgrove MD Triple therapy for leiomyosarcoma of the kidney. J Urol 112: 581~584, 1974
- 2) 南 武・安藤 弘・川口安夫・坂本忠昭・竹野光彦・三橋寛七 腎被膜腫瘍の1例（平滑筋肉腫）。臨皮泌 11 7~13, 1957
- 3) Farrow GM, Harrison EG Jr, Utz DC and ReMine WH : Sarcomas and sarcomatoid and mixed malignant tumor of the kidney in adults-part 1. Cancer 22: 545~550, 1968
- 4) Jacinto TR : Renal liposarcoma with hypertension. Urology 1: 246~248, 1973
- 5) Cano JY and Daltorio RA Renal liposarcoma: A case report. J Urol 115: 747~748, 1976
- 6) 福岡 洋・日台英雄・藤井 浩 : Avascular renal tumor の7例。泌尿紀要 19: 649~659, 1973
- 7) Thomas ML and Lamb GHR: Angiographic features of a primary leiomyosarcoma of the kidney. Aust Radiol 22: 155~157, 1978
- 8) 陳 瑞昌・町田豊平・増田富士男・三木 誠・佐々木忠正・上田正山・谷野 誠・小路 良・赤阪

- 雄一郎：腎平滑筋肉腫の2例。日泌尿会誌 69：1512～1521, 1978
- 9) 鈴木明彦・北川元昭・鈴木和雄・田島 惇・阿曾佳郎：腎平滑筋肉腫の1例。臨泌 38：883～886, 1984
- 10) 高橋忠久・須藤芳徳・浜田和一郎・鈴木唯司・西沢一治：腎平滑筋肉腫の1例—術前の放射線療法が有効であったと考えられた1切除例—。泌尿紀要 27：1223～1229, 1981
- 11) 若林淳一・吉村 忍・尾野晃子：腎平滑筋肉腫の1手術例。防医大誌 7：59～64, 1982
- 12) 石井洋二・引間規夫・藤岡良彰・本田伊克・菊地宏和・山田記道・川井 博・石神邦孝：腎平滑筋肉腫の1例。臨泌 36：653～656, 1982
- 13) 小田島邦男・馬場志郎・早川正道・藤岡俊夫：腎平滑筋肉腫と陰茎癌の重複症例。泌尿紀要 29：425～431, 1983
- (1985年5月21日受付)