

原発巣および再発巣の切除の判断に MRI 検査が 参考となった後腹膜脂肪肉腫の 1 例

栗林 宗平¹, 中井 康友¹, 辻 博隆¹

弓場 覚¹, 波多野浩士¹, 中山 雅志¹

垣本 健一¹, 久保 千明², 西村 和郎¹

¹大阪国際がんセンター泌尿器科, ²大阪国際がんセンター病理科

A CASE OF RETROPERITONEAL LIPOSARCOMA IN WHICH MAGNETIC RESONANCE IMAGING WAS USEFUL IN THE DECISION OF RESECTION OF PRIMARY AND RECURRENT TUMORS

Sohei KURIBAYASHI¹, Yasutomo NAKAI¹, Hirotaka TSUJI¹,

Satoru YUMIBA¹, Koji HATANO¹, Masashi NAKAYAMA¹,

Kenichi KAKIMOTO¹, Chiaki KUBO² and Kazuo NISHIMURA¹

¹The Department of Urology, Osaka International Cancer Institute

²The Department of Pathology, Osaka International Cancer Institute

A 47-year-old female was referred to our hospital because of retroperitoneal tumor which was detected by computer tomography (CT). Since the tumor was considered to be benign by magnetic resonance imaging (MRI), she was followed by MRI every 3 months. The site of the tumor was gradually increased, and 15 months after presentation, a lesion with high signal intensity on diffusion weighted image (DWI) appeared in the tumor. At that time, we performed tumor resection considering the tumor to be malignant. Pathological diagnosis was dedifferentiated liposarcoma. Three years and two months after the operation, liposarcoma recurred in the left retroperitoneal space. Because it showed low signal intensity on DWI, which was compatible with well-differentiated liposarcoma, further follow-up was carried out. Eleven months after the recurrence, a lesion with high signal intensity on DWI appeared in the tumor. We performed tumor resection again, leading to pathological diagnosis of recurrence of dedifferentiated liposarcoma. She remained free of disease at 4 months after surgery.

(Hinyokika Kiyo 64 : 145-149, 2018 DOI : 10.14989/ActaUrolJap_64_4_145)

Key words : Dedifferentiated liposarcoma, Retroperitoneum, MRI

緒 言

脂肪肉腫は軟部肉腫の一種であり、後腹膜原発軟部肉腫の中で最も頻度が高く、治療は外科的切除とされている。今回、MRI 検査が治療方針の決定に参考となった後腹膜脂肪肉腫の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 47歳, 女性

主 訴 : 特になし

既往歴 : 虫垂炎 (13歳時に手術), 子宮外妊娠, 帝王切開 (31, 37, 39歳時に手術)

現病歴 : 2011年 6 月, 心窩部痛の精査のため近医で施行された CT で後腹膜腫瘍を指摘され, 加療目的に当科紹介受診。

現 症 : 血圧 139/98 mmHg, 脈拍 70 bpm, 体温

36.8 °C. 腹部平坦, 軟, 圧痛なし。下腹部正中, 右下腹部に手術瘢痕あり。

血液検査所見 : WBC 5,000/mm³, RBC 440 × 10⁴/mm³, Hb 12.4 g/dl, Ht 33.0%, Plt 25.7 × 10⁴/mm³, Cr 0.53 mg/dl, アルドステロン 29.7 pg/ml, アドレナリン 0.01 ng/ml, ノルアドレナリン 0.28 ng/ml, ドパミン 0.02 ng/ml 未満, 血漿レニン活性 1.0 ng/ml/hr.

蓄尿検査 (排泄量) : アドレナリン 6.6 μg/day, ノルアドレナリン 156 μg/day, ドパミン 750 μg/day, バニリルマンデル酸 4.1 mg/day.

画像所見 : MRI 検査で, 左腎上極に 4.5 cm 大の多数の嚢胞様の腫瘍が集簇する腫瘍を認めた。T1 強調像, 拡散強調像で低信号を示し, T2 強調像では, 等信号から軽度高信号を示した (Fig. 1).

腫瘍が副腎由来であれば endothelial cyst が疑われ, 腫瘍が副腎以外由来のものであれば, 骨髄脂肪腫や奇

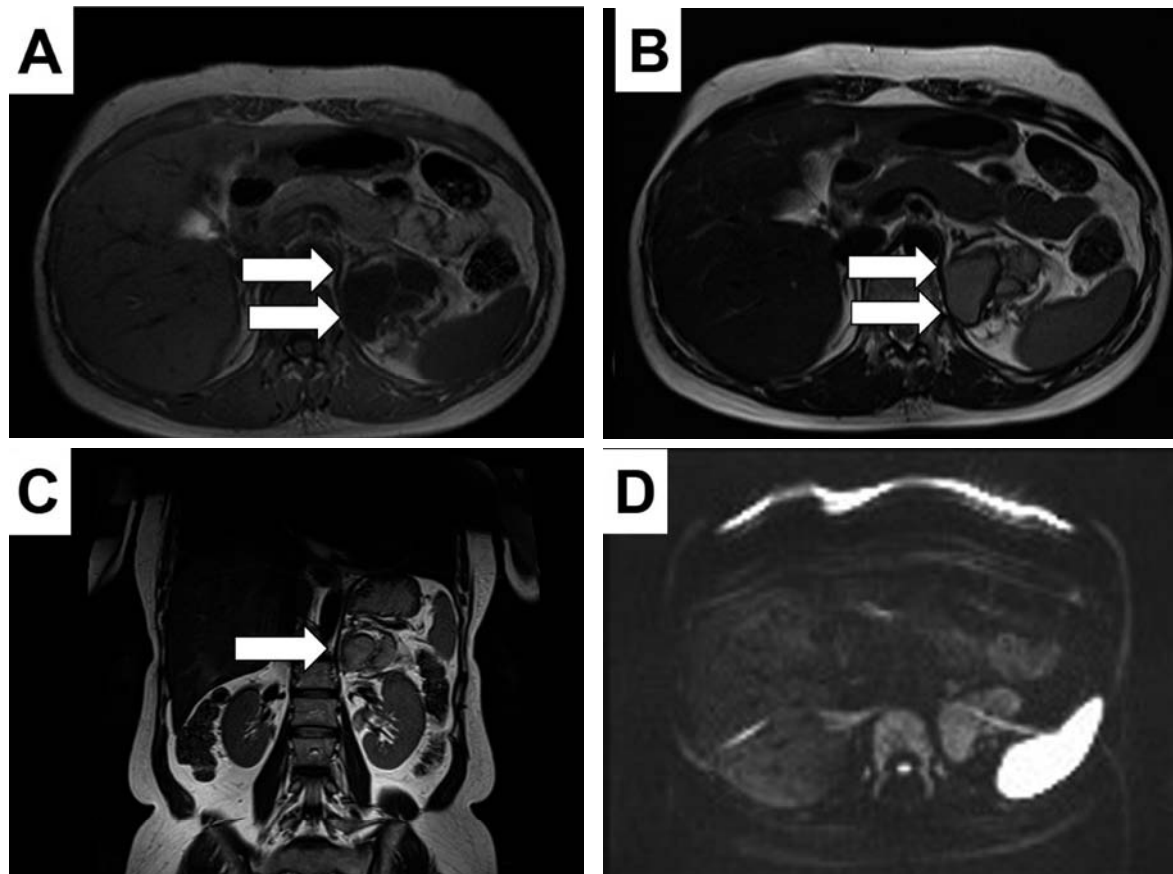


Fig. 1. Abdominal MRI (arrow heads: the tumor): (A) T1-weighted image. (B, C) T2-weighted image. (D) Diffusion-weighted image.

形腫が疑わしいと考えた。いずれにしても、MRI 上悪性を疑う所見に乏しく、画像検査で経過観察の方針とした。

経過：MRI で経過観察を行っていたが、腫瘍は緩徐に増大し、1 年 3 カ月後には MRI 拡散強調像で高信号を認める部位が出現した (Fig. 2)。悪性の可能性もあり、切除術を施行の方針とした。

手術所見：全身麻酔下に仰臥位とし、腹部正中切開

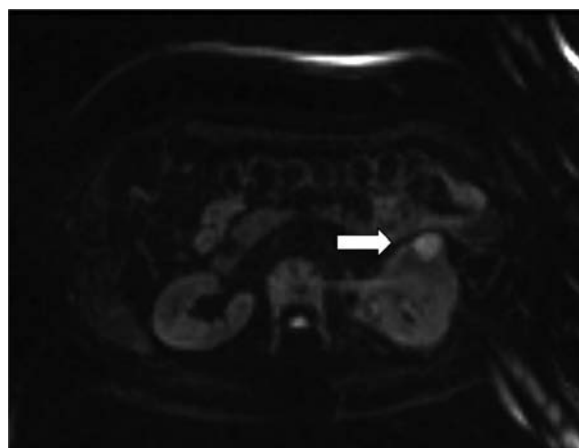


Fig. 2. After 15 months from presentation, a lesion with high signal intensity on DWI appeared in the tumor (arrow).

をおき、後腹膜腫瘍摘出術を施行した。手術時間は、7 時間 17 分、出血量は 1,060 ml であった。腫瘍は腎と癒着していた。腎との癒着部位を術中迅速診断に提出したところ、血管筋脂肪腫疑いとの診断であり、腎臓は温存する方針とし、一部腎被膜をつけて摘出した。

病理所見：豊富な線維粘液状間質に紡錘形あるいは多核の異型細胞を認めた。一部に高分化型脂肪肉腫と考える組織像も認められた。MDM-2、CDK-4 陽性反応を示した。以上のことから脱分化型脂肪肉腫の診断を得た (Fig. 3)。

術後経過：術後 CT で経過観察を行っていたが、術直後より腎門部から腎腹側に術後の炎症性変化と思われる癒着組織を認めていた (Fig. 4A)。術後 3 年変化なく経過したが、術後 3 年 2 カ月後に腓尾部と横隔膜脚部の間に境界不明瞭な脂肪識からなる腫瘍の出現を認めた (Fig. 4B)。

この腫瘍は MRIT1 強調像、T2 強調像で高信号を示し、拡散強調像で低信号を示し、画像上脱分化型脂肪肉腫の高分化成分の再発と考えられた (Fig. 4C)。腫瘍は周囲組織との境界が不明瞭であり、部位的にも完全切除困難と考え、経過観察の方針とした。その後脂肪肉腫の再発病変は MRI で経過観察を行ったが、

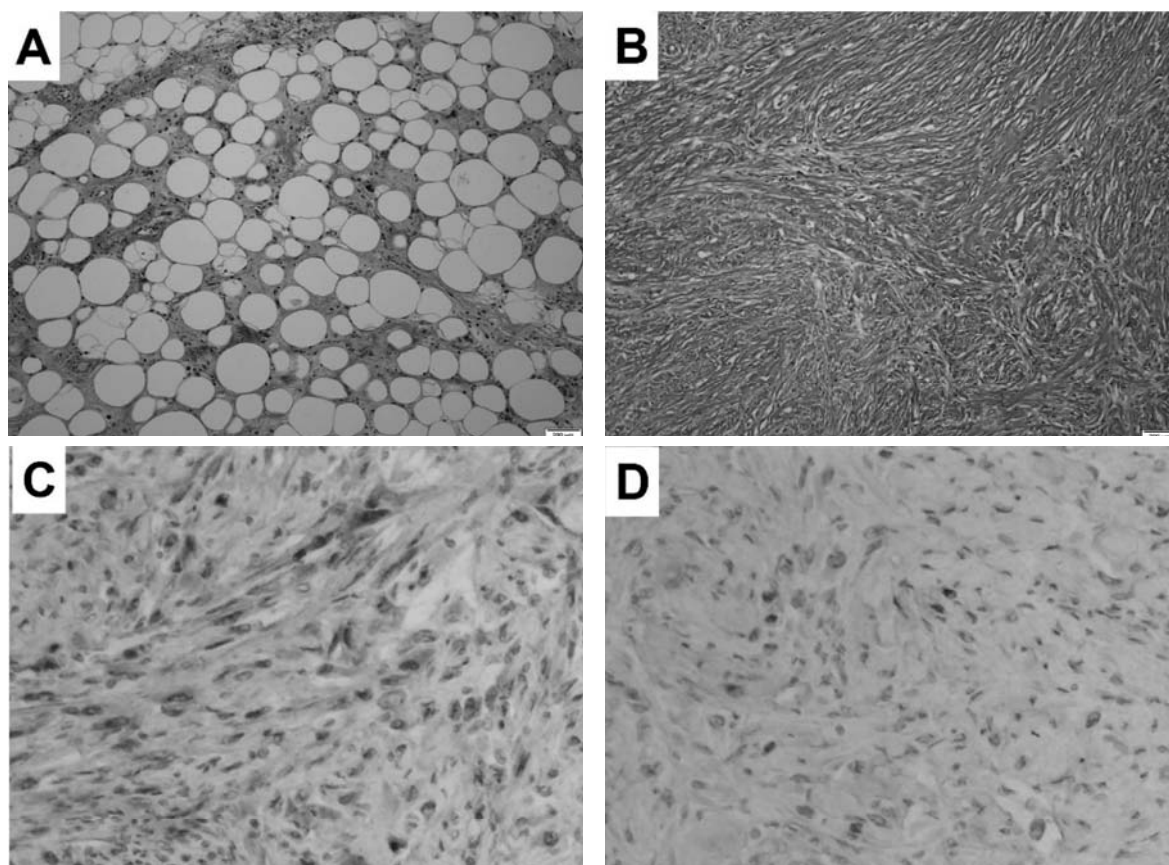


Fig. 3. Microscopic findings showed that the tumor was composed of scattered lipoblasts (A) and spindle cells (B). Immunohistochemical staining showed positive expression of CDK-4 (C) and MDM-2 (D).

術後4年2カ月後横隔膜脚部の腫瘍だけではなく、腎門部の瘢痕組織と考えていた腫瘍も増大が認められた。腎門部の腫瘍には拡散強調像で高信号を示す部分も出現し (Fig. 5), 脂肪肉腫の脱分化型成分の再発が強く疑われたため、後腹膜腫瘍切除術、左腎合併切除術を施行した。

病理所見：横隔膜脚部腫瘍に関しては、高分化型脂肪肉腫の像を示しており、腎腫瘍に関しては、紡錘形の異型細胞が増殖しており、腎実質への浸潤を認めた。

脱分化型脂肪肉腫再発との診断を得た。

術後経過：術後4カ月経過した現在再発認めず経過している。

考 察

MRI 拡散強調像は、水分子の拡散運動を画像化したものであり、悪性腫瘍では高信号を示すため腫瘍の良性・悪性の鑑別に一般的に使用されているが¹⁾、近年軟部組織腫瘍でも、良性・悪性の鑑別に有用であると報告されている²⁾。本症例は初診時に MRI 拡散強調像で低信号であった腫瘍が、高信号へと変化したことにより、悪性腫瘍の可能性が強くなったため切除術を行ったところ、腫瘍は脱分化型脂肪肉腫であること

が明らかとなった。本症例は良性腫瘍と考えられた腫瘍を経時的に観察する際に、MRI 拡散強調像が参考となったと考えられた。

後腹膜発生の肉腫は、全肉腫の約15%を占め、その約40%が脂肪肉腫であるとされている³⁾。肉腫の治療は十分な切除マージンをとった広範切除が原則であるが、後腹膜発生の肉腫は、腫瘍から切離面まで十分な距離の確保が困難となることが問題である⁴⁾。Tan らの675例の後腹膜に発生した肉腫を検討した報告によると、他臓器の合併切除を含めた完全切除の可否が局所再発や死亡することの独立した危険因子であると報告しており、後腹膜肉腫の手術でも完全切除を目指した切除を行うことが重要である⁵⁾。彼らはこの報告の中で完全切除の可否以上に、摘除組織の組織型が予後を予測する上で重要であることも報告している。脂肪肉腫は、組織学的に高分化型、脱分化型、粘液型、多型型に分類されるが、脱分化型・多型型は高分化型・粘液型に比べると局所再発、遠隔転移、死亡のリスクのすべてが有意に高かったと報告しており、悪性度の高い組織型が腫瘍内に存在するかどうか見極めることが予後を予測するうえできわめて重要である。また、高分化型脂肪肉腫が脱分化することもあり、近年の研究では c-JNK 経路が関与するのではないかと考えら

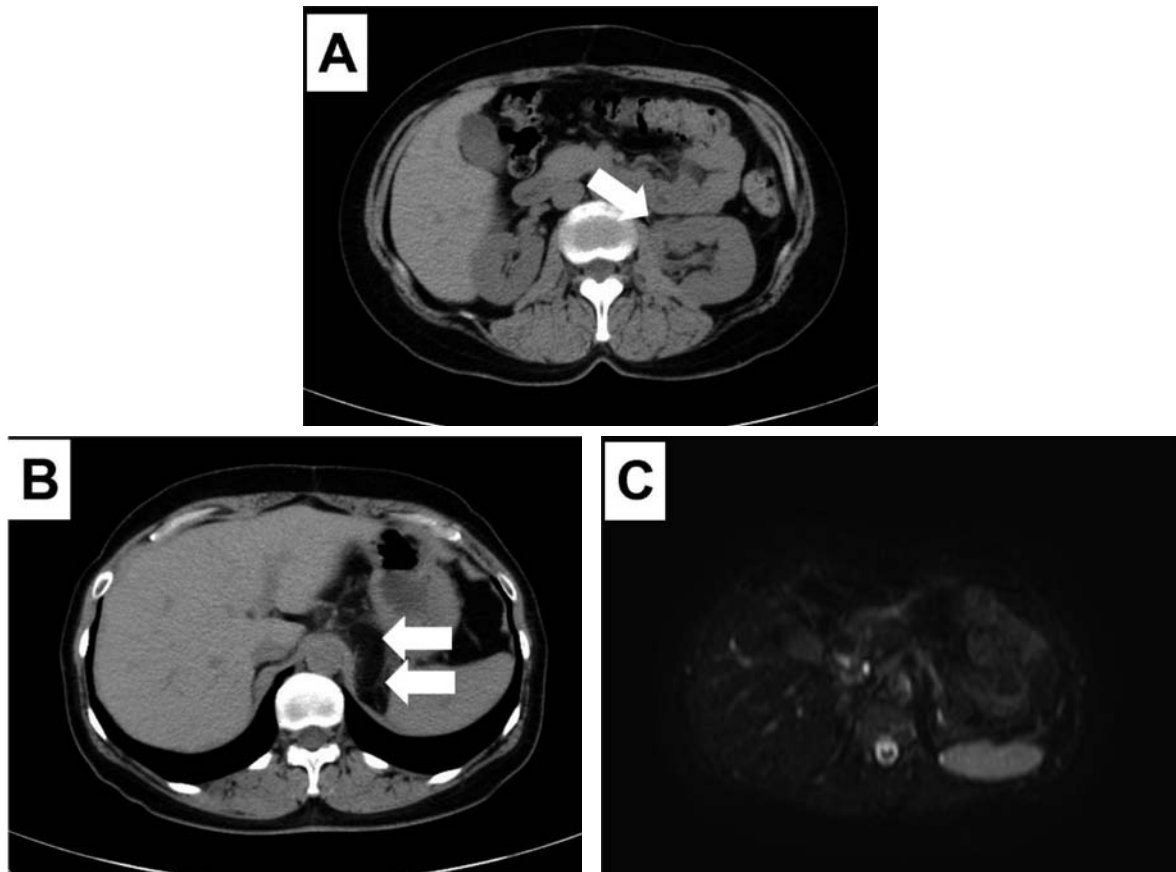


Fig. 4. (A) CT after operation demonstrated a mass at the left renal hilum which was suggested to be scar tissue (arrow). (B) Recurrent tumor between left crus of diaphragm and pancreas tail (arrow). (C) This tumor showed low signal intensity on DWI.

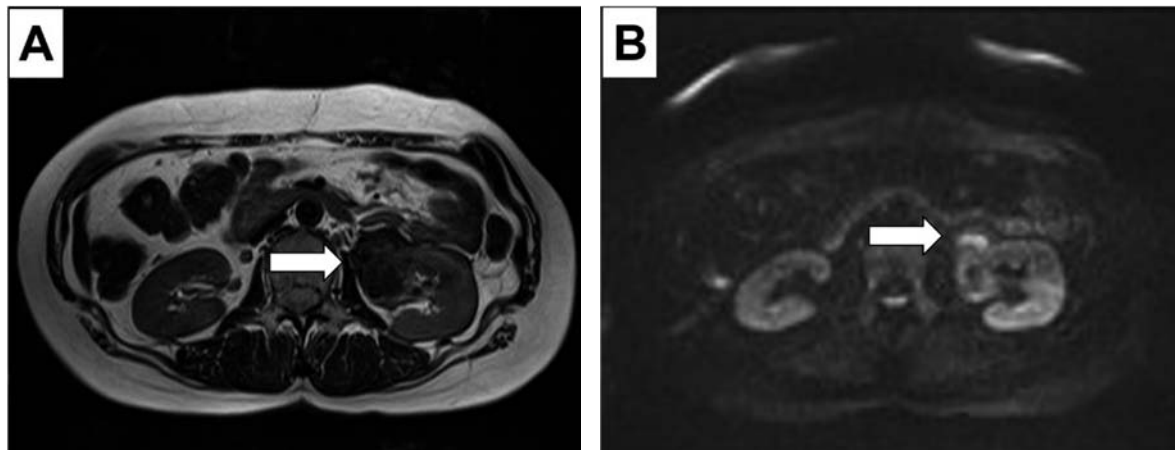


Fig. 5. The mass on the hilum of the left kidney increased (A, arrow) and showed high signal intensity on DWI (B, arrow).

れている⁶⁾。後腹膜脂肪肉腫の診断において、CT、MRI 検査が有用とされており、遠隔転移の検索においては、造影CT、FDG-PET-CT 検査が有用とされている⁶⁾。また、FDG-PET-CT 検査が早期の再発検索に有用とされている⁷⁾。後腹膜脂肪肉腫は組織型によらず約半数の症例が局所再発を来すことが知られている⁵⁾。局所再発した後腹膜脂肪肉腫でも、手術が基本的な治療であるが、局所再発に対し手術を行い完全

切除が行えなかった場合、疾患特異的生存率は手術を施行していない症例と比較し有意差がないことが示されている⁸⁾。また、Neuhaus らは、局所再発症例において症状が出現するまで経過観察を行うことを推奨している⁹⁾。後腹膜発生の脂肪肉腫の再発においては、周囲脂肪織との境界が不明瞭となり手術による完全切除が困難となることや、再手術であるため手術侵襲が初回手術と比較し大きくなるため、手術に躊躇するこ

とがある。特に術後に小さな局所再発を見つけた時にどの時点で手術を行うのか判断に苦慮することがある。高分化型脂肪肉腫が再発した場合は、症状がなければ経過観察も1つの手段であるとされているが⁸⁾, 脱分化型脂肪肉腫が再発した場合でも再発病変が、高分化型成分のみであることもあることが指摘されており¹⁰⁾, 再発病変が高分化型成分のみであることが考えられる場合は、経過観察を行うことも可能と考えられる。その際に、MRI 拡散強調像の所見が経過観察を行う際の判断の参考となる可能性がある。ただし、脂肪肉腫において MRI 拡散強調像でどの程度の感度で脱分化型を検出可能であるが検討した報告はないため、MRI 拡散強調像の所見はあくまで参考にとどめることに留意は必要である。

本症例においても、再発の際に MRI 拡散強調像で高信号を認めなかったため、1年3カ月経過観察を行ったが、高信号を示す部位が認められたため、手術を施行したところ、脱分化型脂肪肉腫の再発が認められた。以上のことから脱分化型脂肪肉腫が再発した際の治療方針の決定、経過観察に際して MRI 検査は参考となると考えられた。

結 語

MRI 検査が参考となった脱分化型脂肪肉腫の1例を経験した。

文 献

- 1) Charles-Edwards EM and deSouza NM: Diffusion-weighted magnetic resonance imaging and its application to cancer. *Cancer Imaging* **6**: 135-143, 2006
- 2) Lee SY, Jee WH, Jung JY, et al.: Differentiation of malignant from benign soft tissue tumours: use of additive qualitative and quantitative diffusion-weighted MR imaging to standard MR imaging at 3.0 T. *Eur Radiol* **26**: 743-754, 2016
- 3) Mettlin C, Priore R, Rao U, et al.: Results of the national soft-tissue sarcoma registry. *J Surg Oncol* **19**: 224-227, 1982
- 4) 福岡伴樹, 越川克己, 真田祥太郎, ほか: 原発巣切除後5度の反復再発巣切除を行った後腹膜原発脂肪肉腫の1例. *日臨外会誌* **76**: 2555-2561, 2015
- 5) Tan MC, Brennan MF, Kuk D, et al.: Histology-based classification predicts pattern of recurrence and improves risk stratification in primary retroperitoneal sarcoma. *Ann Surg* **263**: 593-600, 2016
- 6) Matthyssens LE, Creytens D and Ceelen WP: Retroperitoneal liposarcoma: current insights in diagnosis and treatment. *Front Surg* **2**, 2015 doi: 10.3389/fsurg.2015.00004. eCollection 2015
- 7) Niccoli-Asabella A, Altini C, Notaristefano A, et al.: A retrospective study comparing contrast-enhanced computed tomography with ¹⁸F-FDG-PET/CT in the early follow-up of patients with retroperitoneal sarcomas. *Nucl Med Commun* **34**: 32-39, 2013
- 8) Crago AM and Singer S: Clinical and molecular approaches to well differentiated and dedifferentiated liposarcoma. *Curr Opin Oncol* **23**: 373-378, 2011
- 9) Neuhaus SJ, Barry P, Clark MA, et al.: Surgical management of primary and recurrent retroperitoneal liposarcoma. *Br J Surg* **92**: 246-252, 2005
- 10) 西澤恒二, 寒野 徹, 高橋 毅, ほか: 診断に苦慮した後腹膜腔原発脂肪肉腫の1例. *泌尿紀要* **52**: 11-14, 2006

(Received on August 9, 2017)
(Accepted on December 14, 2017)