

## 女性尿道後方に発生した 類上皮平滑筋腫（平滑筋芽腫）の1例

埼玉医科大学総合医療センター泌尿器科（主任：斉藤 博教授）

酒井 康之，山田 拓己，福田 博志

一柳 暢孝，鎌田 成芳，長浜 克志

谷沢 晶子，渡辺 徹，斉藤 博

埼玉医科大学総合医療センター病理部（主任：糸山進次教授）

糸 山 進 次

### A CASE OF EPITHELIOID LEIOMYOMA (LEIOMYOBlastoma) OF THE URETHRA

Yasuyuki SAKAI, Takumi YAMADA, Hiroshi FUKUDA,

Nobutaka ICHIYANAGI, Shigeyoshi KAMATA, Katsushi NAGAHAMA,

Akiko TANIZAWA, Tohru WATANABE and Hiroshi SAITOH

*From the Department of Urology, Saitama Medical Center, Saitama Medical School*

Shinji ITOYAMA

*From the Department of Pathology, Saitama Medical Center, Saitama Medical School*

A 25-year-old woman was admitted to our hospital because of a painless, slow growing mass arising from the external genitalia. The mass had been developing for a few years. She did not have difficulty voiding nor was there hematuria. Magnetic resonance imaging revealed a well-circumscribed, 4 cm, solid tumor between the urethra and the anterior vaginal wall. After needle biopsy confirmed a benign tumor arising from the smooth muscle, the tumor was removed by a transvaginal approach. The histopathological diagnosis was epithelioid leiomyoma (leiomyoblastoma), which often occurs in the stomach or uterus, but seldom around the urethra. The patient has remained well without recurrence for 20 months after surgery.

(Acta Urol. Jpn. 46 : 41-43, 2000)

**Key words:** Urethra, Epithelioid leiomyoma

#### 緒 言

尿道周囲に発生する平滑筋腫は比較的稀である<sup>1)</sup>。今回われわれは尿道後方に発生した類上皮平滑筋腫（平滑筋芽腫）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：25歳，女性

主訴：外陰部腫瘍

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：数年前より自覚していた外陰部の無痛性腫瘍が徐々に増大してきたため前医を受診した。超音波検査で膀胱～尿道後方に充実性腫瘍を認め、1997年8月13日当科紹介受診となった。初診時、排尿困難や膀胱刺激症状は認められなかった。膀胱鏡で膀胱内は正常所見であったが、内診で尿道後方の腔前壁下に鶏卵

大の腫瘍を触知したため尿道の腫瘍性病変を疑い、精査加療目的で8月18日に入院した。

身体所見：胸腹部に異常所見なし。尿道後方の腔前壁下に鶏卵大，弾性硬，可動性のある無痛性腫瘍を認める。

検査所見：血算，血液生化学，検尿で異常値なし。腫瘍マーカー CA19-9，CA125 は正常範囲であった。

画像所見：胸部単純撮影は異常なし。骨盤部 MRI (Fig. 1) で尿道後壁と腔前壁の間に約 4×2 cm の境界明瞭な卵円形の充実性腫瘍を認め、病変の内部は T1 強調像では筋組織と同程度からやや高い低信号，T2 強調像では中等度の高信号を示した。

入院後経過：尿道膀胱鏡で尿道膀胱粘膜面への腫瘍の突出，圧迫像は認めなかった。腔鏡で腫瘍は腔壁に覆われた状態で腔内腔に突出していた。8月28日に経腔針生検で得た組織像 (Fig. 2) は，好酸性紡錘形細胞が豊富な myxoid matrix の間に数珠状あるいは網

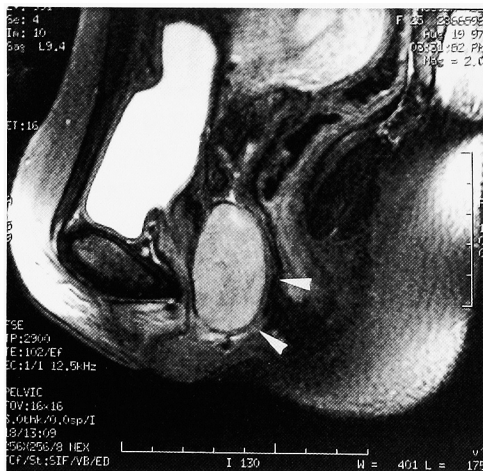


Fig. 1. MRI revealed the solid tumor between the urethra and the vaginal wall (arrow heads).

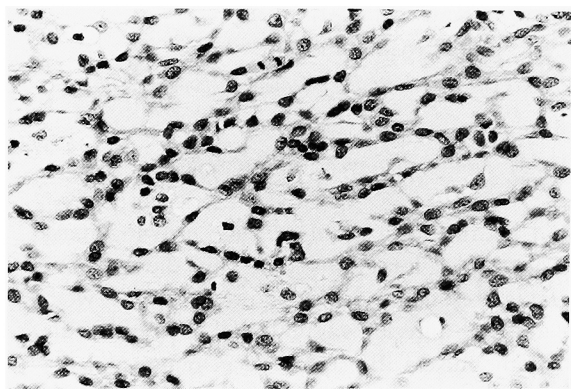


Fig. 2. Microscopic appearance of the tumor.

目状に増殖しており、細胞質内に小空胞を持つものが少なく、細胞形態としては平滑筋に類似していた。Mitosisは強拡大50視野中2個のみであった。以上より、平滑筋由来の良性腫瘍の診断で経腔的腫瘍摘除術を行った。

手術所見：腔壁は腫瘍に沿って縦に切開し、腔粘膜下で尿道背側を覆う筋層に沿って腫瘍を剥離したが周囲との癒着はなく剥離は容易であった。腫瘍遠位端に尿道周囲組織に連続した索状物がみられ、これを尿道より完全に切除した。

術後経過：術後1週間ほどフォーリーカテーテルを留置。カテーテル抜去後排尿障害は認めなかった。

病理組織所見：腫瘍断面は長径4.3 cm、短径3.2 cmの楕円形で、かすかに黄色を帯びた乳白色できわめて均一な質感があった。光顕像は針生検と同様で、好酸性紡錘形細胞が myxoid matrix の間に数珠状に増殖しており、平滑筋増生から成る腫瘍と思われた。mitosisはごく少数(強拡大50視野中0~2個)であった。免疫組織化学染色では Desmin (+), Vimentin (+), Smooth muscle actin (+), Sarcomeric actin (+), CEA (-), Factor VIII (-)

であり、平滑筋腫瘍に一致する所見であった。しかし通常の平滑筋腫瘍と比較すると、光顕像で核が丸みを帯び、細胞全体は紡錘形だが短かく、細胞配列も束状の部分なかった。以上より病理組織診断を類上皮平滑筋腫(epithelioid leiomyoma)または平滑筋芽腫(leiomyoblastoma)とした。

退院後経過：退院後20カ月経過し転移再発はない。なお患者は退院後10カ月に女兒を出産した。

## 考 察

類上皮平滑筋腫(平滑筋芽腫)は、1960年 Martinら<sup>2)</sup>が、奇妙な丸い細胞から成る胃の筋原性腫瘍を報告し、1962年 Stout<sup>3)</sup>が同様の所見を示す69例の胃腫瘍を平滑筋腫瘍の変異形として平滑筋芽腫と記載したのが初めてであり、生物学的に良性とも悪性とも言えないとされた。以来、この腫瘍に対して平滑筋芽腫という用語が用いられるようになったが、その後、電子顕微鏡上の微細構造で筋原性とは断定できない点や免疫組織学的に平滑筋腫(肉腫)との相違点を指摘されるようになった<sup>4)</sup>。1992年現在 WHO の分類ではこの腫瘍の良悪性を区別し、良性を類上皮平滑筋腫(epithelioid leiomyoma)または良性平滑筋芽腫(benign leiomyoblastoma)とし、悪性を類上皮平滑筋肉腫(epithelioid leiomyosarcoma)または悪性平滑筋芽腫(malignant leiomyoblastoma)に分けている。

全身のさまざまな平滑筋存在部位で発生の報告があるが、胃が本邦での報告だけで250例以上と最も多く<sup>5)</sup>、腸壁、腸間膜、子宮などでの報告も多い。泌尿器科領域では後腹膜発生例が散見され、さらに頻度は低いが腎被膜<sup>6)</sup>、尿管<sup>7)</sup>、膀胱<sup>8)</sup>、前立腺<sup>9)</sup>、精巣上体<sup>10)</sup>での発生が報告されている。本症例は尿道後壁と腔前壁の間に発生したが、この部位での類上皮平滑筋腫(平滑筋芽腫)の発生を記載した報告はわれわれが検索したかぎりでは存在しなかった。周囲臓器では Tavassoliら<sup>11)</sup>が腔平滑筋腫瘍60例中2例が類上皮平滑筋腫であったと報告、Nielsenら<sup>12)</sup>は陰唇発生の平滑筋腫瘍25例中7例が類上皮様であったと報告している。これらの中に尿道に近い部位での発生例が含まれている可能性があるが、本症例は手術時の所見で腫瘍遠位端の索状物が腔壁ではなく尿道周囲組織と連続していたことより尿道周囲より発生したと考えた。

病理組織学的にみると、細胞の形は平滑筋腫(肉腫)のように紡錘形ではなく円形または多角形ないし短い紡錘形で、配列は平滑筋腫(肉腫)のように束状ではなくシート状であり、あたかも上皮細胞の様な、いわゆる類上皮様の形態をとるのが最大の特徴である。また核は平滑筋腫(肉腫)のように細長くなく、むしろ円形か楕円形で、細胞の中央に位置し、細胞質

は好酸性あるいは透明化している。電子顕微鏡像ではミオフィラメントが通常の平滑筋腫瘍に比べて少ないとされている。免疫組織化学的には平滑筋腫 (肉腫) ほど筋原性マーカーには染まらないが, Vimentin に染まることは多いとされ, 中には神経系マーカーに染まるという報告もある<sup>13)</sup>。また本症例では腫瘍細胞の間に豊富な myxoid が存在したが, 陰唇発生の平滑筋腫瘍は細胞周囲に myxoid をもつものが多いとされており, 本症例も発生が陰唇に近く, 似た性質をもったのかも知れない。

悪性度については, 胃発生例で, 周囲組織に浸潤のあるもの, 強拡大で核分裂像が50視野中5個以上あるもの, 径6 cm 以上のものは悪性度が高いとされ, 転移例, 死亡例が報告されている。子宮発生例では細胞をグレード1~3に分けたとき, グレード2と3かつ核分裂像が強拡大50視野に3~4個以上あるときは悪性度が高いと報告されている<sup>14)</sup>。治療は悪性度が高い場合は平滑筋肉腫と同様の治療, すなわち完全な病巣切除, 放射線照射, CYVADIC などの化学療法が勧められており, また悪性でなくとも十分な経過観察が必要とされている。本症例は腫瘍細胞が核が均一で核分裂像が少なかったこと, 径4 cm で周囲を圧迫するように発育していたことより再発転移の可能性は低いと思われ, 腫瘍のみの摘出に留めた。しかし, 胃発生例では mitosis が強拡大50視野で1~2個でも転移再発例が報告されており, 本症例でも注意深い経過観察が必要と思われる。

## 結 語

女性尿道後方に発生した類上皮平滑筋腫 (平滑筋芽腫) の1例について報告し, 若干の文献的考察を加えた。なおこの部位で同腫瘍の発生は非常に稀と思われた。

## 文 献

- 1) 遠坂 顕, 山崎 彰, 広川 信: 尿道平滑筋腫の2例. 泌尿紀要 **34**: 2041-2046, 1988
- 2) Martin JF, Bazin P, Feroldi J, et al.: Tumeurs myoïdes intra-murales de l'estomac: considerations microscopiques a propos de 6 cas. Ann Anat Pathol (Paris) **5**: 484-497, 1960
- 3) Stout AP: Bizarre smooth muscle tumor of the stomach. Cancer **15**: 400-409, 1962
- 4) Enzinger FM and Weiss SW: Soft tissue tumors. 3rd ed., Mosby-Year Book, St. Louis, 1995
- 5) 宮城島拓人, 大久保尚, 中馬 誠, ほか: 有茎性管外発育を示した巨大な胃平滑筋芽腫の1例. 日消病会誌 **92**: 1947-1953, 1995
- 6) 大石睦夫, 伊藤 博, 村瀬達良, ほか: 腎被膜より発生したと思われる平滑筋芽細胞腫 (leiomyoblastoma) の1例. 泌尿紀要 **34**: 1635-1638, 1988
- 7) de jagar H: Bizzare smooth-muscle tumor of the ureter. J Pathol **87**: 424-425, 1964
- 8) Soloway D, Simon MA, Milikowski C, et al.: Epithelioid leiomyoma of the bladder: an unusual cause of voiding symptoms. Urology **51**: 1037-1039, 1998
- 9) Schuwacher S, Moll R, Muller SC, et al.: Epithelioid leiomyoma of the prostate. Eur Urol **30**: 125-126, 1996
- 10) Tokunaka S, Taniguchi N, Hashimoto H, et al.: Leiomyoblastoma of the epididymis in a child. J Urol **143**: 991-993, 1990
- 11) Tavassoli FA and Norris HJ: Smooth muscle tumors of the vagina. Obstet Gynecol **53**: 689-693, 1979
- 12) Nielsen GP, Rosenberg AE, Koerner FC, et al.: Smooth-muscle tumor of the Vulva. Am J Surg Pathol **20**: 779-793, 1996
- 13) Newman PL, Wadden C and Fletcher CDM: Gastrointestinal stromal tumors: correlation of immunophenotype with clinicopathologic features. J Pathol **164**: 107-117, 1991
- 14) Prayson RA, Goldblum JR and Hart WR: Epithelioid smooth-muscle tumors of the uterus. Am J Surg Pathol **21**: 383-391, 1997

(Received on May 21, 1999)  
(Accepted on September 18, 1999)