

腎被膜に発生した血管肉腫の1例

山本 恭代¹, 井崎 博文¹, 原田 明典¹, 田上 隆一¹岸本 大輝¹, 谷本 修二¹, 福森 知治¹, 高橋 正幸¹西谷 真明¹, 金山 博臣¹, 佐野 暢哉², 上間 健造³¹徳島大学病院泌尿器科, ²徳島大学病院病理部, ³徳島赤十字病院泌尿器科

A CASE OF RENAL CAPSULAR HEMANGIOSARCOMA

Yasuyo YAMAMOTO¹, Hirofumi IZAKI¹, Akinori HARADA¹, Ryuichi TAUE¹,
Tomoteru KISHIMOTO¹, Syuji TANIMOTO¹, Tomoharu FUKUMORI¹, Masayuki TAKAHASHI¹,
Masa-aki NISHITANI¹, Hiro-omi KANAYAMA¹, Nobuya SANO² and Kenzo UEMA³¹The Department of Urology, Tokushima University, School of Medicine²The Department of Pathology, Tokushima University Hospital³The Department of Urology, Tokushima Red Cross Hospital

We report herein a case of renal capsular hemangiosarcoma. A 68-year-old man was admitted to our hospital for treatment of a retroperitoneal tumor identified incidentally on abdominal computed tomography (CT) for follow-up of superficial bladder tumor. The tumor was about 7cm in diameter, positioned between the right kidney and the liver. Right nephrectomy was performed under a diagnosis of renal capsular tumor. Pathological diagnosis was hemangiosarcoma and positive surgical margins were suspected. Radiotherapy was performed postoperatively to a total dose of 50 Gy. Hemangiosarcoma frequently occurs in the skin, but is rare in the retroperitoneal cavity. Neither metastasis nor recurrence has been seen as of 19 months postoperatively.

(Hinyokika Kyo 52 : 215-217, 2006)

Key words : Renal capsular tumor, Hemangiosarcoma

緒 言

血管肉腫は頭部や皮膚に発生することが多く、後腹膜腔に発生することは稀である。今回、われわれは腎被膜から発生した血管肉腫を経験したので報告する。

症 例

患者：68歳、男性

主訴：右後腹膜腫瘍の精査、加療

家族歴：特記事項なし

既往歴：10歳時に虫垂切除術。1991, 1994, 2001年表在性膀胱腫瘍にて、徳島赤十字病院で経尿道的膀胱腫瘍切除術を受ける。2001年の術後は、再発予防のため、BCG 膀胱内注入療法を施行。ヨードアレルギーあり。

現病歴：2004年6月18日、徳島赤十字病院で膀胱腫瘍の経過観察のため撮影したCTで、偶然右腎外側に腫瘍を指摘された。特に自覚症状はみられなかった。右腎被膜腫瘍の疑いで、精査、加療目的にて8月3日、当院紹介され入院となる。

入院時現症：身長 164 cm, 体重 63 kg. 右下腹部に虫垂切除術の手術痕を認める以外、理学的に異常所見なし。

入院時検査所見：検尿、一般検血、血液生化学に異常所見なし。

画像検査所見：腹部超音波検査では、右腎外側に低エコー域の辺縁不整な腫瘍を認めた。腹部CTでは、右腎外側と肝右葉の間隙に沿うように、頭尾方向に約7 cm にわたる不整形の細長い軟部腫瘍影を認めた。腫瘍の一部は低吸収域を呈した (Fig. 1)。MRI は、T1 強調画像では低信号、T2 強調画像では淡く不均一な高信号域であった。造影すると、早期相では造影

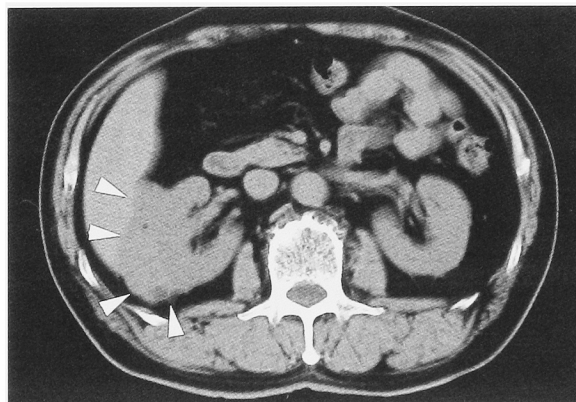


Fig. 1. Computed tomography showed a tumor between the right kidney and the liver (arrows).

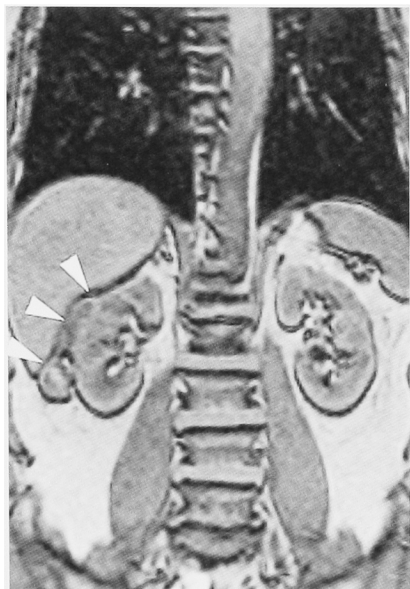


Fig. 2. MRI (coronal, contrast enhanced, T1 weighed) revealed a renal capsular tumor (arrows).

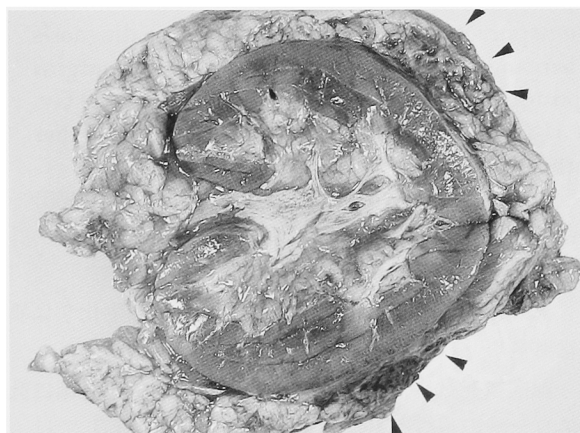


Fig. 3. Macroscopic appearance of the right kidney. Arrows indicate a renal capsular tumor.

効果に乏しいものの、後期相では一部が濃染した (Fig. 2)。前医で撮影した2001年11月9日のCTでは、腫瘍は認めなかった。胸部CT、骨シンチで、他臓器転移やリンパ節転移は認めなかった。

入院後経過：右腎被膜腫瘍と診断し、2004年8月9日、全身麻酔下で経腰的に第12肋骨を切除して、右腎とともに腎被膜腫瘍摘出術を施行した。右腎は外側や後面の剥離は容易であったが、前面や上方では腹膜や肝臓との癒着があり、腹膜、肝臓も一部合併切除した。

摘出標本：腎周囲脂肪組織内に出血を伴った、境界不明瞭な柔らかい褐色の腫瘍を認めた (Fig. 3)。

病理組織学的所見：H-E染色では不規則なスリット状の血管腔を形成する腫瘍性病変が、境界不明瞭に発育していた (Fig. 4)。腎実質への浸潤を認め、腎外側の切除断端部にも腫瘍細胞が存在した。免疫染色で

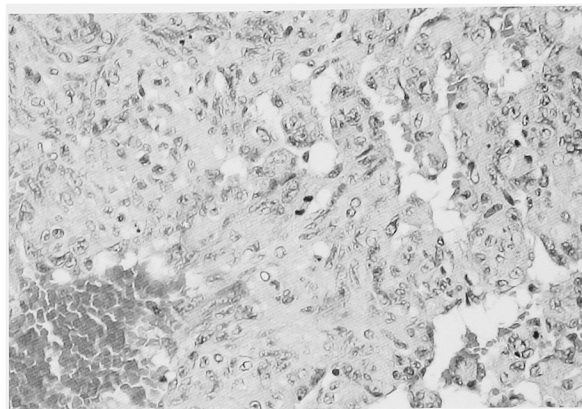


Fig. 4. Microscopic appearance of the tumor. The tumor consists of spindle cells with prominent nuclear atypia and mitotic figures, forming irregular vascular channels.

は、第Ⅷ因子関連抗原 (+)、CD34 (+)、SMA (-)、MIB1LI 30%以上であった。以上より、腎被膜より発生した血管肉腫と診断した。

経過：術後、切除断端が陽性のため、補助療法として腎摘出部に放射線を50 Gy照射した。術後19カ月の現在、再発、転移の徴候はみられていない。

考 察

血管肉腫は肉腫の中でも稀であり、軟部組織に発生する肉腫の2%と報告されている¹⁾。皮膚や軟部組織での発生が多く、その約60%が発生する。後腹膜腔における発生は稀であり、血管肉腫の1~3%程度と報告されている^{1,2)}。

皮膚の血管肉腫は、出血しやすいために紫斑性で、病型は斑状型、結節型、潰瘍型を呈する³⁾。後腹膜腔に発生するものは、多くは無症状で、腫瘍が増大して周囲臓器を圧迫するようになってはじめて見つかることが多い⁴⁾。一般的に後腹膜腫瘍で症状がみられる場合は、腹痛や腹部腫瘤の触知が多い⁵⁾。

血管肉腫の15~20%は二次性といわれ、その原因には放射線照射、外傷、膿胸などがある。乳癌術後にリンパ浮腫の生じた患肢に生じる例も二次性のものとして頻度が高い^{1,2,6)}。また thorotrast や塩化ビニルなどの暴露も、一因となる²⁾。本症例では、表在性膀胱癌の治療歴はあるが、外傷や放射線照射の既往や、有害物質の暴露はなかったため、二次性の血管肉腫は考えにくい。

血管肉腫を含めて、後腹膜腫瘍は特徴的な画像所見がないため、画像診断は困難である。超音波やCTでは、腫瘍の存在、場所、大きさ、腫瘍の内部構築などを知ることは可能であるが確定診断を得ることは難しい^{5,7)}。Scialpi ら⁵⁾は gadolinium-DTPA で造影し脂肪抑制したMRIが、腫瘍の血管増生の有無や発生母地、周囲臓器との関係を知るのに有効である、と報告

している。本症例ではヨードアレルギーのため、造影 CT が行えず、造影 MRI が腫瘍の発生母地や血管増生を予想するうえで有用であった。

確定診断は病理組織診断にて得られる。血管肉腫の組織像は、内皮細胞への分化に伴う腫瘍性血管形成像が特徴である。核異型の強い内皮細胞が乳頭状増殖して、血管腔を形成したり、腫瘍細胞が索状配列を示すなどの多様な形態をとる⁸⁾。免疫染色では第Ⅷ因子関連抗原が陽性となるが、腫瘍が未分化な場合は陰性となる。CD34 や UEA-1 (ulex europaeus agglutinin-1) などの免疫染色も診断の補助に用いられている^{1, 2)}

血管肉腫は局所再発や遠隔転移を生じやすく、予後が悪い。放射線や抗癌剤の感受性も低いため、初回治療で完全に外科的切除を行うことが重要であるが、標準的治療法は確立されていない。一般的には腫瘍の辺縁から 5 cm 以上離して広範囲に切除することが推奨されている³⁾が、後腹膜腫瘍の場合は解剖学的に困難である。Mark ら¹⁾は、血管肉腫症例、67例 (うち後腹膜腔での発生は 1 例のみ) を集計し、外科的切除に放射線治療を併用した群が最も予後がよかったと報告している。また、手術と化学療法を行った群は、手術単独の群と比較しても予後に差はないとしていた。本症例では、切除断端陽性と考えられたため、外科治療と放射線治療を併用した。血管肉腫に対する確立した化学療法は存在しないが、頭頸部の血管肉腫症例にパクリタキセルを使用し、9 例中 8 例が PR 以上という良好な成績を納めたとの報告もある⁹⁾。パクリタキセルは微小管蛋白重合を促進して、細胞骨格が増強され、細胞分裂を抑制する。血管新生を抑制する作用があり、血管肉腫は血管内皮細胞由来の肉腫のため、パクリタキセルが有用であると考えられる。また、同じタキサン系のドセタキセルやエトポシドが有効との報告もある¹⁰⁾

近年、血管肉腫の発生頻度が高い皮膚科領域では免疫療法として、リコンビナント インターロイキン 2 (rIL-2) の投与が行われている^{3, 10)}。rIL-2 が誘導する LAK 細胞が内皮細胞を障害することから血管肉腫の治療に用いられている。しかし、後腹膜腔に局所再発した症例に投与したものの無効であったとの報告もある⁴⁾。本症例では、術後に放射線治療を行い、画像上明らかな局所再発を認めず、退院を患者様、ご家族が希望されたため、化学療法は施行しなかった。今後、再発が不幸にも生じた場合には、rIL-2 やタキサン系の抗悪性腫瘍薬の投与も考慮したい。

血管肉腫の予後を検討した報告¹¹⁾では、腫瘍サイズが 5 cm 以上、単一の治療法のみ、核分裂像が多いことが予後不良因子であった。これらの因子を 2 項目

以上有する場合、1 項目有する場合、0 項目の場合の 2 年生存率はそれぞれ、5, 17, 50% である。本症例では、外科治療、放射線治療を行っているが、腫瘍サイズが大きく、核の分裂像も多いため、厳重な経過観察が必要である。

結 語

腎被膜から発生した血管肉腫の 1 例を報告した。腎摘除術と放射線治療を行い、術後 19 カ月間、再発、転移を認めていないが、血管肉腫は一般的に予後不良であり、今後の厳重な経過観察が必要である。

本論文の要旨は第 76 回日本泌尿器科学会四国地方会で発表した。

文 献

- 1) Mark RJ, Poen JC, Tran LM, et al.: Angiosarcoma: a report of 67 patients and a review of the literature. *Cancer* **77**: 2400-2406, 1996
- 2) Naka N, Ohsawa M, Tomita Y, et al.: Angiosarcoma in Japan: a review of 99 cases. *Cancer* **75**: 989-996, 1995
- 3) 増澤幹男: 血管肉腫の治療. *Derma* **77**: 57-63, 2003
- 4) 中村小源太, 絹川常郎, 田中國晃, ほか: 後腹膜腔に発生した血管肉腫の 1 例. *泌尿紀要* **46**: 169-171, 2000
- 5) Scialpi M, Galasso C, Maggio AD, et al.: Primary retroperitoneal angiosarcoma: MR imaging features. *Eur Radiol* **11**: 791-795, 2001
- 6) Cañero F, Gipponi M, Peressini A, et al.: Radiation-associated angiosarcoma: diagnostic and therapeutic implications—two case reports and a review of the literature. *Cancer* **77**: 2496-2502, 1996
- 7) 佐々木文雄, 古賀佑彦, 竹内 昭, ほか: 後腹膜血管肉腫の 1 症例—CT による鑑別診断への試み—. *画像診断* **4**: 267-270, 1984
- 8) 下田忠和: 悪性血管内皮腫. 軟部腫瘍アトラス. 石川栄世, 遠城寺宗知編. 第 1 版, pp 167-176, 文光堂, 東京, 1989
- 9) Fata F, O'Reilly E, Ilson D, et al.: Paclitaxel in the treatment of patients with angiosarcoma of the scalp or face. *Cancer* **86**: 2034-2037, 1999
- 10) 増澤幹男: 血管肉腫の治療戦略—北里大学病院皮膚科 2003 年度版—. *日皮会誌* **113**: 1523-1533, 2003
- 11) Naka N, Ohsawa M, Tomita Y, et al.: Prognostic factors in angiosarcoma: a multivariate analysis of 55 cases. *J Surg Oncol* **61**: 170-176, 1996

(Received on May 9, 2005)

(Accepted on September 15, 2005)