

Pseudoaneurysm を形成し著明な嚢胞性変化を伴った 腎血管筋脂肪腫の1例

大阪警察病院泌尿器科 (部長 : 藤岡秀樹)

桃原 実大, 小森 和彦, 高田 剛

今津 哲央, 本多 正人, 藤岡 秀樹

A CASE OF RENAL ANGIOMYOLIPOMA WITH MARKED CYSTIC DEGENERATION AND PSEUDOANEURYSM

Chikahiro MOMOHARA, Kazuhiko KOMORI, Tsuyoshi TAKADA,
Tetsuo IMAZU, Masato HONDA and Hideki FUJIOKA
From the Department of Urology, Osaka Police Hospital

A 59-year-old woman consulted our hospital for a left renal mass which she had been aware of for 4 years. The tumor was in the lower portion of the left kidney. It was a cystic tumor whose wall was enhanced on computed tomography and magnetic resonance imaging. The lesion 3.0 cm in diameter, which was enhanced equally to the aorta, was found in a part of the wall. It was thought to be a pseudoaneurysm by renal angiography. We suspected a cystic renal cell carcinoma because of the plural feeding arteries and tumor staining, and performed left total nephrectomy. Pathological diagnosis was angiomyolipoma with few fat components. To our knowledge only 3 previous cases of renal angiomyolipoma with marked cystic degeneration have been reported in Japan. In all 3 cases, it was difficult in preoperative diagnosis to distinguish angiomyolipoma with cystic degeneration from cystic renal cell carcinoma complicated cyst. Moreover, this is the first reported case of renal angiomyolipoma with marked cystic degeneration and pseudoaneurysm.

(Acta Urol. Jpn. 48 : 105-108, 2002)

Key words: Renal angiomyolipoma, Cystic degeneration, Pseudoaneurysm

緒 言

腎血管筋脂肪腫 (renal angiomyolipoma, 以下腎AML) はしばしば遭遇する腎臓の良性腫瘍である。腎AMLは超音波断層法, CTなどの画像診断上, 特徴的な所見を呈する場合が多いが, 脂肪成分のきわめて少ない症例や嚢胞変性をきたした症例などでは腎細胞癌との鑑別が困難となる。今回, われわれはpseudoaneurysmを形成し著明な嚢胞性変化を伴った腎AMLを経験したので報告する。

症 例

患者 : 59歳, 女性

主訴 : 左腎腫瘍精査加療希望

既往歴・家族歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 1999年1月風邪により近医内科受診した際, 左側腹部腫瘍を指摘され某大学病院受診。左腎腫瘍を疑われ同年3月18日当科紹介受診となった。

入院時現症 : 左季肋部に表面平滑, 弾性硬, 可動性良好な手拳大の腫瘍を認めた。

入院時検査成績 : 末梢血液像では軽度の貧血 (赤血

球 $331 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 9.8 g/dl) を認めたが生化学所見はほぼ正常であった。赤沈1時間値 50 mm と軽度亢進を認め, 尿沈渣にて赤血球 1~4/hpf の顕微鏡的血尿を認めた。尿細胞診は class II であった。

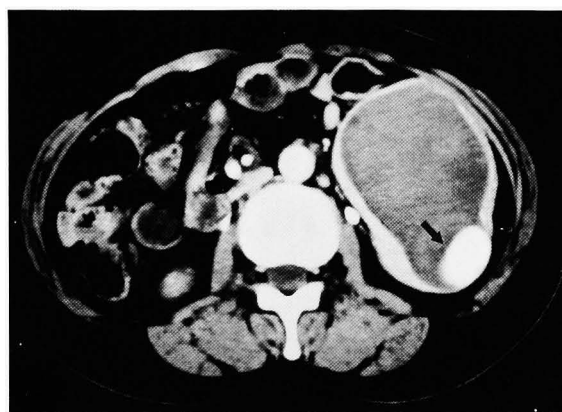


Fig. 1. CT reveals a cystic mass in the left kidney. The mass consisted of a slightly high density area. Its wall was enhanced and there was a pseudoaneurysm 3 cm in diameter (arrow).

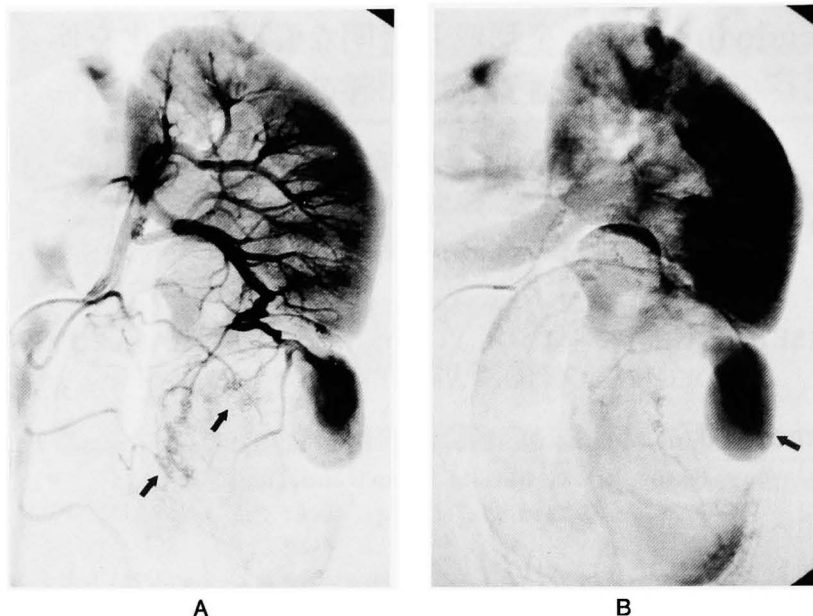


Fig. 2. (A) Angiography showed two feeding arteries and tumor stain by which we suspected cystic RCC (arrows) and (B) revealed pseudoaneurysm in the cystic mass (arrow).

画像所見：左腎エコーで高低エコーの混在した径9.4×6.9 cm 大の腫瘤を認め、DIPにて左腎盂・腎杯が軽度拡張し、かつ腎下極に径10 cm 程度の透亮像が描出された。造影CTにおいて左腎下極に7×6×10 cm 大の内部に軽度造影効果を示す嚢胞性腫瘤を認めた。腫瘤壁は一部肥厚し造影され、さらに径3 cm 大の大動脈とほぼ同等に造影される領域が認められた (Fig. 1)。またMRIでは嚢胞性腫瘤の内容がT1強調画像でやや低信号から高信号で造影効果を示さず、T2強調画像では低信号であることから血腫あるいは壊死組織の存在が示唆された。左腎動脈造影で

は左腎下極の腫瘤は大部分無血管野であったが、CTおよびMRIでみられる壁肥厚部分に一致して腫瘍血管の増生、腫瘍濃染と考えられる像および2本の栄養動脈を認めた。栄養動脈の1本は造影剤が2層性に貯留し pseudoaneurysm を形成していると考えられた (Fig. 2A, B)。以上の画像診断所見から嚢胞性腎細胞癌を強く疑い1999年4月19日左経腰の腎摘除術を施行した。

手術所見：腫瘍は周囲組織への癒着を認めず比較的容易に摘除可能であった。また腎門部リンパ節は触知しなかった。

摘除標本：摘除重量510 g。左腎下極に位置する10.5×8.5×6.5 cm 大の一部壁肥厚を認める嚢胞性腫瘍で、内部は大量の凝血塊で充満し壁は黄白色を呈していた (Fig. 3)。

病理組織学的所見：HE染色にて好酸性の細胞質を



Fig. 3. Cross section of the specimen showed a cystic mass in the lower portion. A lot of coagula filled it.

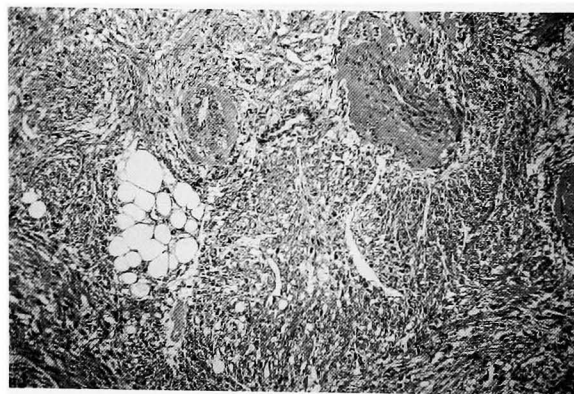


Fig. 4. Microscopic findings demonstrated angiomyolipoma (HE staining; magnification: ×400).

Table 1. Reported cases of renal angiomyolipoma with marked cystic degeneration in Japan

No.	報告者	年齢	性別	部位	大きさ	術前診断	治療	内容液	嚢胞性変化の要因
1	越智ら ¹¹⁾ (1985)	19歳	女	左上極	17×20 cm	嚢胞性腎腫瘍	腎摘	血液で充滿	腫瘍内血管の破綻
2	田中ら ¹²⁾ (1991)	71歳	男	右上極	不明	嚢胞性腎癌疑	腎摘	暗褐色漿液性	腫瘍の出血壊死
3	東間ら ¹³⁾ (1996)	35歳	男	左上極	φ24 cm	出血性腎囊胞	切除	血性漿液性	不明
4	本症例	59歳	女	左下極	7×10 cm	嚢胞性腎癌疑	腎摘	凝血塊で充滿	腫瘍の出血壊死

有する紡錘形の細胞の増殖がみられ壁の肥厚した血管と同時に、範囲は少ないが脂肪組織も認められた。細胞密度域は高くなく核分裂像はほとんど認められなかった。紡錘形の細胞は Sm-actin 免疫染色に陽性で平滑筋由来と考えられ自験例は AML と診断された (Fig. 4)。

術後経過: 経過は良好で再発などは認めず、現在外来にて経過観察中である。

考 察

腎 AML は血管、平滑筋、脂肪組織それぞれの成分を有する腎臓の良性腫瘍である。その発生頻度は、8,501の剖検例中27例 (0.3%)¹⁾。腎実質性腫瘍の3%²⁾と報告されている。腎 AML は、結節性硬化症 (tuberous sclerosis, 以下 TS) に合併することもよく知られており、諸家の報告によれば、TS に約40~80%の比率で合併するとされている³⁾。元森ら⁴⁾は、461例の AML 本邦報告例を集計し、そのうち TS を合併したのは14.8%であり、その89.7%が両側多発性であるのに対し、TS を合併しない症例は片側単発性が84.7%と報告している。また男女比は1:2.9と女子に多く、30歳代に好発している⁵⁾。

腎 AML は脂肪成分を含むため画像診断上特徴的所見を呈することが多く、超音波画像では腎洞部を示す中心部高エコーと同等か高いエコーの腫瘍として認められる。CT では腫瘍内部に脂肪成分を示す CT 値マイナスの領域を認め、MRI でも T1 強調画像にて脂肪成分を示す高信号を呈す。また腎動脈造影では新生血管、微小動脈瘤、静脈相での玉ねぎの断面様像 (whorled onion peel appearance) などの特徴的な所見を呈すとされている。

しかし、腎 AML の成分の比率は症例により様々であり、脂肪成分が少なくおもに血管と平滑筋成分から成る場合や、腫瘍内部に出血をきたした場合などでは腎細胞癌との鑑別に難渋することは既に多く報告されている⁶⁻⁹⁾。自験例では著明な嚢胞性変化をきたしており、また脂肪成分が乏しい腎 AML であったため腫瘍壁は特徴的な画像所見を示さず、超音波画像上も高低エコーの混在した像を呈した。さらに血管造影では腎細胞癌を示唆する複数本の栄養動脈が存在したことから嚢胞性腎細胞癌を強く疑い腎摘除術を施行した。

腎 AML の合併症としては腫瘍内出血、腫瘍破裂、一部の嚢胞性変化などが知られているが、自験例のように腫瘍全体が嚢胞性変化を呈した症例は稀である¹⁰⁾。調べ得たかぎり、本邦では自験例を含めて4例の報告がされており、これらを Table 1 に示した¹¹⁻¹³⁾。いずれもが術前診断において腎 AML と診断し得ておらず、嚢胞性腎細胞癌、complicated cyst などとの鑑別は術前には非常に困難であると考えられた。自験例において著明な嚢胞性変化をきたした原因は、腫瘍組織が凝血塊を囲むように壁をなして存在し、その壁には石灰化やヘモジデリンの沈着がみられたことから、慢性出血による二次的变化と考えられた。

一般に pseudoaneurysm とは動脈壁の一部で連続性が絶たれて血液が周囲組織に漏出し、線維性組織に囲まれた腔が生じて、内部からの動脈圧によりこの腔が次第に拡大する状態と定義されている¹⁴⁾。自験例では何らかの原因で腎 AML 内に生じた出血により pseudoaneurysm を形成し、さらに病理組織学的検索では凝血塊側の pseudoaneurysm の壁が同定できなかったことから、その部分から慢性の出血が続き著明な嚢胞性変化をきたしたものと考えられた。

こうした pseudoaneurysm を伴った腎 AML の症例は本邦では森川ら¹⁵⁾により過去に1例報告されている。しかし、自験例のように pseudoaneurysm と著明な嚢胞性変化を伴った腎 AML はわれわれの調べ得たかぎり初めての報告と考えられた。

結 語

Pseudoaneurysm を形成し著明な嚢胞性変化を伴った稀な腎 AML の1例を経験した。腎 AML の術前診断において、脂肪成分が少なく、腫瘍内出血により修飾が加わり著明な嚢胞性変化をきたした例では嚢胞性腎細胞癌、complicated cyst などとの鑑別が困難と考えられた。

本論文の要旨は第172回日本泌尿器科学会関西地方会で発表した。

文 献

- 1) Hadju SI and Foote FW: Angiomyolipoma of the kidney: report of 27 cases and review of the

- literatures. J Urol **102**: 396-400, 1969
- 2) Mazeman E, Wemeau L, Biserte J, et al.: Renal angiomyolipoma. a case report of 11 cases. Eur Urol **6**: 328-334, 1980
 - 3) Steiner MS, Goldman SM, Fishman EK, et al.: The natural history of renal angiomyolipoma. J Urol **150**: 1782-1786, 1993
 - 4) 元森照夫, 松岡 啓, 野田信士: 腎血管筋脂肪腫の臨床的検討. 自験例19例と同時期の本邦報告442例について. 西日泌尿 **57**: 460-465, 1995
 - 5) 高士宗久, 村瀬達良, 山本雅憲, ほか: 腎血管筋脂肪腫の3例—本邦194例の統計—. 泌尿紀要 **30**: 65-75, 1984
 - 6) 増田富士男, 菱沼秀雄, 東陽一郎, ほか: CTで腎細胞癌が疑われた腎良性疾患. 泌尿器外科 **2**: 195-198, 1989
 - 7) 伊藤勝陽, 小野千秋, 内藤 見, ほか: 腎腫瘍の画像診断. カレントセラピー **17**: 1447-1450, 1999
 - 8) 水関 清, 近藤俊文: 腎細胞癌以外の腎腫瘍における超音波像の検討. 超音波医 **23**: 137-144, 1996
 - 9) 佐藤通洋: 腎癌と血管筋脂肪腫. 臨画像 **12**: 388-390, 1996
 - 10) Antonopoulos P, Drossos C, Triantopoulou C, et al.: Complications of renal angiomyolipomas. CT evaluation Abdom Imaging **21**: 357-360, 1996
 - 11) 越智邦明, 石井慶太, 安藤昌之, ほか: 巨大嚢胞を伴った腎 angiomyolipoma の1例. 日臨外 **46**: 133-138, 1985
 - 12) 田中重人, 森川洋二, 辻田正昭: 術前診断困難であった腎血管筋脂肪腫の1例. 泌尿器外科 **4**: 719-722, 1991
 - 13) 東間未来, 永田幹男, 佐藤威文, ほか: 巨大嚢胞を伴った腎血管筋脂肪腫の1例. 泌尿器外科 **10**: 721-722, 1997
 - 14) 小池 明, 伊藤正夫, 安田 公, ほか: 仮性動脈瘤 別冊日本臨床 循環器症候群 **III**: 434-437, 1996
 - 15) 森川利則, 千代田晨, 鹿谷隆朗, ほか: 腎血管筋脂肪腫の腫瘍内出血により形成された pseudo-aneurysm. 内科 **62**: 901, 1988
- (Received on June 28, 2001)
(Accepted on September 25, 2001)