

腎血管筋脂肪腫15例の臨床的検討

国立大阪病院泌尿器科 (医長: 高羽 津)

辻村 晃, 三木 健史, 後藤 隆康

月川 真, 菅尾 英木, 高羽 津

CLINICAL STUDIES OF 15 CASES
OF RENAL ANGIOMYOLIPOMA

Akira Tsujimura, Takeshi Miki, Takayasu Gotoh, Makoto Tsukikawa,

Hideki Sugao and Minato Takaha

From the Department of Urology, Osaka National Hospital

Fifteen cases of renal angiomyolipoma seen between May, 1988 and October, 1994 in our hospital are presented. Surgical treatment was performed in 6 cases, 1 of which was falsely diagnosed as liposarcoma by frozen specimen during the operation. Nine cases were only followed-up by ultrasonography and/or computed tomography.

In 2 cases, in which enucleation was performed after a follow-up period of more than one year, tumors were inclined to grow rapidly. In 5 cases, which were not operated and followed-up for more than one year, tumors were inclined to grow very slowly.

(Acta Urol. Jpn. 41: 581-584, 1995)

Key words: Renal angiomyolipoma

緒 言

腎血管筋脂肪腫 (以下 AML と略す) は腫瘍が小さければ定期的に経過観察されることが多い一方、大きくなれば自然破裂を生じる危険もある。治療においても経過観察のみのものや腎動脈塞栓術、腫瘍核出術から腎摘除術に至るまで症例に応じて選択されている。今回われわれは当科で経験した腎 AML について臨床的検討を加えたので報告する。

対 象 と 方 法

1988年5月から1994年10月までの過去6年半の間に当科で経験した腎 AML 15症例を対象とした。年齢は23歳から72歳、平均54歳で、性別では男性6例、女性9例であった。15例のうち、手術を施行したのが6例、現在まで経過観察しているのが9例であった。手術を施行した6例においてはその術式およびその選択理由、腫瘍の大きさ、手術時間、出血量について検討し、経過観察している9例においては観察期間と腫瘍の大きさの変化について検討した。なお全15例のうち1年以上の経過観察期間を有する7例 (手術施行2例、経過観察のみ5例) においては、腫瘍最大径の推移と観

察期間から求めた腫瘍の doubling time についてさらに検討を加えた。腫瘍 doubling time は腫瘍を球形と概算した上でその腫瘍径より体積 V を求め、 $\log 2 \div (\log V - \log V_0) / (t - t_0)$ に従い計算し求めた。

結 果

1. 手術施行症例

手術を施行した6症例は年齢は38歳から72歳まで、性別では女性が5例を占め、患側では左右どちらも3例ずつであった (Table 1)。当科では原則として腫瘍径が4 cm を越えているものを手術対象とし、可能なかぎり腎保存手術を目指すことにしている。腎摘除術を施行した3例のうち、症例1は術中一旦腎保存を目指したものの腫瘍径が大きくなり、やむなく腎摘除術に至ったものである。症例4は CT で内部がほぼ脂肪の density と等しい50mm 大の腫瘍を認めたため手術を選択した。しかし動脈造影で不整な腫瘍の新生血管と腫瘍濃染像を認めた (Fig. 1)。手術でも一旦腫瘍核出術を施行した後の迅速病理検査において脂肪肉腫との診断をえたため、引き続き腎摘除術を追加したものである。凍結標本では不整な核をもつ細胞の増殖巣がみられ、核内および胞体内に空胞状の変化があると判断さ

Table 1. 手術施行6症例

症例	氏名	年齢	性別	患側	術式	摘除重量	腫瘍の大きさ	手術 (min)	阻血 (min)	出血量 (ml)
1	T. M.	38	F	R	腎摘除術	430 g	120×100 mm	165	—	220
2	I. K.	72	F	L	核出術	—	43×42 mm	140	35	270
3	Y. S.	59	F	L	核出術	—	30×30 mm	145	22	70
4	E. F.	62	F	R	腎摘除術	380 g	50×50 mm	180	—	310
5	M. K.	45	F	L	核出術	—	25×25 mm	110	15	45
6	Y. T.	43	M	R	腎摘除術	420 g	130×100 mm	180	—	650

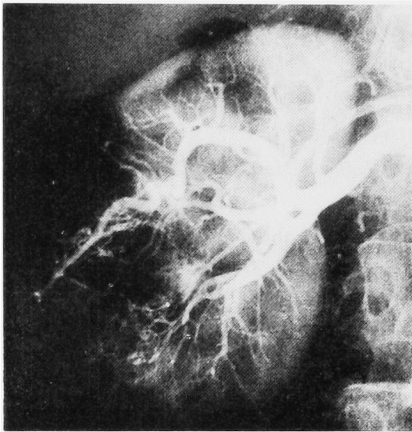


Fig. 1. 迅速病理検査で脂肪肉腫と診断された症例 (Table 1, 症例4) の腎動脈造影

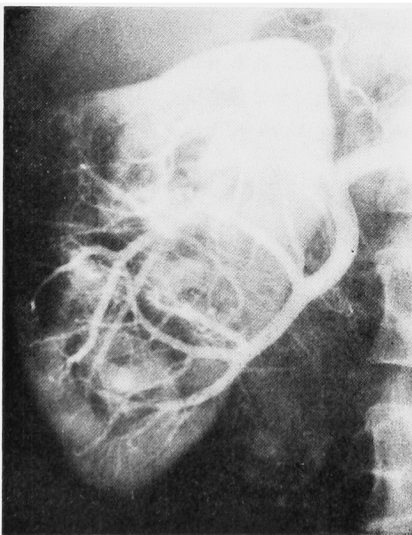


Fig. 2. 術前腎動脈造影後に肺梗塞を発症した症例 (Table 1, 症例6) 腎動脈造影

れ脂肪肉腫と診断されたが、後日の永久標本では比較的典型的な AML の像であり、平滑筋、脂肪細胞に多少の核異型はみられるものの明らかな脂肪芽細胞は認めなかった。症例6はCT等で右腎 AML と診断さ

れ、他院での右腎動脈造影ではやや hypervascular な像を呈したが (Fig. 2), 動脈造影直後に肺梗塞を生じ、緊急処置にて救命しえた後、当科へ紹介された。この症例は腫瘍最大径が 130 mm と大きかったこと、および術前の肺梗塞の既往を考慮し術後の臥床期間を短くする意味も含め、腎保存手術を断念し腎摘除術を選択したものである。なお術中出血量が 650 ml と他の症例よりも比較的多かったのは、術前の肺梗塞を懸念して麻酔科からの指示により術中ヘパリンを用い、易出血性であったことが影響しているものと思われた。一方腫瘍核出術を施行した3例では腫瘍径が 4 cm 未満の症例も2例認めたが、これは後述するごとく腫瘍の増大速度が速く手術に至ったものである。

3例の術中腎動脈阻血時間は15分から35分で、手術例全例において輸血を要した症例はなかった。

2. 経過観察症例

現在まで経過観察している9症例の年齢は23歳から68歳まで、性別では男性5例、女性4例、患側では右6例、左3例である。このうち1年以上の経過観察期間を有する症例は5例のみであった (Table 2)。腫瘍最大径では 30 mm が最大で、この症例は現在まで不安定狭心症を含めた心機能障害を認めたこともあり経過観察としている。また全15症例のうち唯一1例のみが結節性硬化症に合併していた。この症例は対側腎に腫瘍核出術にて摘除した 8 cm 大の平滑筋腫を有していたが、AML と平滑筋腫を合併した症例はきわめて稀と思われた。

3. 腫瘍最大径の推移・doubling time

1年以上の経過観察の後に腫瘍核出術を施行した2例と現在まで経過観察している9例のうち1年以上の観察期間を有する5例の合計7例において腫瘍最大径の推移および腫瘍の doubling time について検討した。腫瘍体積の doubling time を retrospective に検討すると、手術に至った2例の doubling time は 6.9 (M) と 11.0 (M) でいずれも1年未満であった。逆に現在まで経過観察している5例では doubling time が最低でも 22.5 (M) と大きかった (Table 2)。

Table 2. 経過観察 9 症例および 1 年以上経過観察後に手術を施行した症例の腫瘍最大径の推移と doubling time

	氏名	年齢	性別	患側	観察期間 (M)	腫瘍最大径 (mm)	doubling time (M)
経過観察	M. A.	58	M	L	69	6→6	∞
	T. H.	65	M	R	23	24→30	23.8
	T. F.	56	F	R	28	12→16	22.5
	Y. H.	43	F	L	—	7	—
	I. I.	62	F	R	20	16→17	76.2
	N. Y.	53	M	R	13	14→15	43.5
	I. Y.	23	M	R	—	25	—
	I. T.	68	M	R	—	8	—
	N. Y.	58	F	L	—	7.4	—
手術施行	Y. S.	59	F	L	19	18→34	6.9
	M. K.	45	F	L	35	12→25	11.0

考 察

腎 AML は腎胚芽細胞の遺残物に由来し、血管、筋、脂肪の成分が混在する過誤腫の一種である。1989 年林ら¹⁾は本邦における腎 AML 429 例を集計し、年齢では 30 歳代にピークがあり、性差では 1:2.9 で女性に多く、患側ではやや右に多かったとし、この中で結節性硬化症に合併した率は 33% で、結節性硬化症に合併した症例は男性に多かったと報告している。しかし過去に結節性硬化症に腎平滑筋腫を合併した例はなく、われわれが経験した結節性硬化症に合併した腎病変として AML と平滑筋腫とを合併した症例はきわめて稀なものと思われた。

さて診断における画像的特徴として、超音波検査にて脂肪成分の存在より hyperechoic な像を呈し、CT にて -60HU 程度の低い吸収値を示し、血管造影検査にて新生血管、微小動脈瘤および静脈相での玉ねぎ断面様陰影などの存在を認めることは何度も報告されており²⁾、すでに定説となっている。最近では MRI が診断に有効であったとする報告も散見される^{3,4)}。実際近年これらの画像検査の発達により、incidentaloma も含めその報告例は急増しているが、それでも診断に難渋した報告⁵⁾もなされている。特に AML と脂肪肉腫はもともと画像検査所見にはほとんど差を認めないということより、鑑別は難しいとされている。唯一血管造影検査で脂肪肉腫の方が血管陰影に乏しく、腫瘍周囲を引き延ばされた血管が走行する囊腫様の所見を呈することが多いとされるが、これもさほど特異的ではない。実際、われわれの経験とは逆に術前画像検査で AML と診断したものの、後日病理組織学的に脂肪肉腫と診断された報告もあり⁶⁾、両者の鑑別には慎重にならざるをえない。そのため諸家の報告同

様、われわれも術中迅速病理検査が重要と考えている。しかし凍結標本の限界として永久標本と比較してより異型度が高く見え、そのため悪性を完全には否定できない場合があり、迅速病理検査といえども最終診断には至らない可能性も考慮しておく必要があると思われた。

治療法についても現在では経過観察のみにとめてあるもの、腎動脈塞栓術、腫瘍核出術、腎部分切除術および腎摘除術などさまざまな治療法が選択されている。しかし林ら¹⁾は腎細胞癌との鑑別が困難であった 1984 年以前では 79.2% に腎摘除術が施行されていたが、画像検査の発達に伴い、1985 年以降は腎摘除術の率が以前の半数以下にまで減少していると報告している。AML が良性の過誤腫である以上、むやみに腎摘除術を施行すべきではなく、われわれも定期的な経過観察も含めて可能な限り腎保存を目指すこととしている。しかし AML が大きくなれば自然破裂を生じる可能性があることも周知の事実で、経過観察を含めた治療法の選択が重要な問題となる。治療法の選択としては 1986 年に Oesterling ら⁷⁾が症状と腫瘍の大きさに基づいて提案した 1) 腫瘍の大きさが 4 cm 以上で症状を伴っている場合は腎動脈塞栓術もしくは腎保存手術、2) 腫瘍の大きさが 4 cm 以上で症状がない場合は 6 カ月毎の超音波検査・CT で経過観察、3) 腫瘍の大きさが 4 cm 未満で症状がある場合は、症状がすぐに治まれば経過観察とし、症状が続くようなら腎動脈塞栓術もしくは腎保存手術、4) 腫瘍の大きさが 4 cm 未満で症状がない場合は 1 年毎の超音波検査・CT で経過観察とした治療指針がよく知られている。この様に腫瘍径が 4 cm に達するかどうか重要とされているが、同様に本邦でも木下ら⁸⁾が自然破裂を生じた腎 AML 63 例を集計し、AML 全体での自

然破裂の頻度は14.7%であったことを報告すると同時に、腫瘍径が4cm未満のものの自然破裂の頻度は9.5%と低いのに対し、4cm以上のものは42.9%と高かったと述べている。また最近では腫瘍径が3.5cm以上になると出血の危険性が増加するという報告もある⁹⁾。いずれにせよ、腫瘍径が比較的小さな症例でも厳重な経過観察が重要と思われた。

また Oesterling ら⁷⁾は無症状の腎 AML 9例を3年から9年の間経過観察し、その間に症状が発現したり腫瘍径が増大したものがなかったことより、腎摘除術はできるだけ避けるべきとした。そこでわれわれは当科での全15症例のうち1年以上の経過観察期間を有した7例につき、retrospectiveに腫瘍体積のdoubling timeを検討した。7例のうち2例はしだいに腫瘍径が増大し、それぞれ19カ月、35カ月の経過観察期間を経て腫瘍核出術を施行した (Table 2)。その2例の腫瘍 doubling time はいずれも1年未満と小さかった。一方現在まで経過観察を継続している残り5例では腫瘍 doubling time が大きかった。腫瘍核出術を施行した2例は手術時、腫瘍最大径がそれぞれ34mm、25mmとさほど大きくはなかったが、腫瘍の増大する速度とそれを不安に感じる患者の希望もあり、手術に至ったものである。腎 AML の中には Oesterling らが報告するようにまったく腫瘍が増大しないものと、われわれが経験したように腫瘍 doubling time が1年未満で急速に体積が増大してくるものと2タイプが存在するように思われ、今後はその時点の腫瘍の大きさだけでなく腫瘍の doubling time から腫瘍増大速度も考慮して治療法を選択すべきではないかと考える。

画像診断がさらに進歩を遂げ、incidentalomaを含めて腎 AML に遭遇する機会もさらに増えることが予想される。今後はそれぞれの症例に応じて厳重に経過観察を行い、慎重に治療法を選択することが重要と思われる。

結 語

1) 1988年5月から1994年10月までの過去6年半の間に当科で経験した腎 AML 15症例について検討を加えた。

2) 手術を施行したのが6例 (腎摘除術3例、腫瘍核出術3例)、経過観察のみで経過しているのが9例であった。

3) 腎摘除術3例のうち1例は術中迅速病理検査で脂肪肉腫と診断された。病理検査、特に迅速病理検査では脂肪肉腫とAMLとの鑑別に注意すべきと思われた。

4) 当科で結節性硬化症に合併したのは1例のみで、この症例は対側腎に平滑筋腫を合併していた。

5) 現在まで経過観察している症例のうち、1年以上の経過観察が可能であった5例では腫瘍 doubling time が大きく、1年以上の経過観察後に腫瘍核出術を施行した2例では腫瘍 doubling time が1年未満と小さかった。

本論文の要旨は、第44回日本泌尿器科学会中部総会において報告した。

文 献

- 1) 林 祐太郎, 寺尾咲治, 山崎 巖: 腎血管筋脂肪腫の1例—本邦429例の統計的考察—。泌尿紀要 35: 1755-1759, 1989
- 2) Heckl W, Osterhage HR and Frohmüller HGW: Diagnosis and treatment of renal angiomyolipoma (Based on 15 cases). Urol Int 42: 201-206, 1987
- 3) 鳥居伸一郎, 町田豊平, 増田富士男, ほか: MRIによる腎血管筋脂肪腫 (AML) の診断。日泌尿会誌 77: 554-559, 1986
- 4) Uhlenbrock D, Fischer C and Beyer HK: Angiomyolipoma of the kidney. Comparison between magnetic resonance imaging, computed tomography and ultrasonography for diagnosis. Acta Radiol 29: 523-526, 1988
- 5) Tallarigo C, Baldassarre R, Bianchi G, et al.: Diagnostic and therapeutic problems in multicentric renal angiomyolipoma. J Urol 148: 1880-1884, 1992
- 6) 斎藤 清, 野村 栄: 画像診断にて腎血管筋脂肪腫を思わせた腎脂肪肉腫。西日泌尿 54: 932-935, 1992
- 7) Oesterling JE, Fishman EK, Goldman SM, et al.: The management of renal angiomyolipoma. J Urol 135: 1121-1124, 1986
- 8) 木下博之, 池上元保, 伊東史雄, ほか: 自然破裂をきたした腎血管筋脂肪腫の1例。泌尿器外科 7: 701-704, 1994
- 9) Van Baal JG, Smits NJ, Keeman JN, et al.: The evaluation of renal angiomyolipomas in patients with tuberous sclerosis. J Urol 152: 35-38, 1994

(Received on January 4, 1995)
(Accepted on April 3, 1995)