

腎周囲に発生した炎症型脂肪肉腫の 1 例

谷口 歩¹, 高尾 徹也¹, 大草 卓也¹, 岩西 利親¹,
 松崎 恭介¹, 中川 勝弘¹, 谷川 剛¹, 蔦原 宏一¹,
 今村 亮一¹, 山口 誓司¹, 島津 宏樹², 伏見 博彰²

¹大阪府立急性期・総合医療センター泌尿器科, ²大阪府立急性期・総合医療センター病理科

A CASE OF PERIRENAL INFLAMMATORY LIPOSARCOMA

Ayumu TANIGUCHI¹, Tetsuya TAKAO¹, Takuya OKUSA¹, Toshichika IWANISHI¹,
 Kyosuke MATSUZAKI¹, Masahiro NAKAGAWA¹, Go TANIGAWA¹, Koichi TSUTAHARA¹,
 Ryoichi IMAMURA¹, Seiji YAMAGUCHI¹, Kohki SHIMAZU² and Hiroaki FUSHIMI²

¹The Department of Urology, Osaka General Medical Center

²The Department of Pathology, Osaka General Medical Center

A 65-year-old man had been hospitalized for examination of melena at a separate facility. Computed tomography (CT) showed left renal mass and he was referred to our hospital. Magnetic resonance imaging (MRI) revealed a tumor without adipose components in the perirenal space. Preoperative diagnosis was retroperitoneal malignant tumor. Tumor excision and left nephrectomy were performed. Pathologic evaluation revealed inflammatory liposarcoma. He has been followed up for 10 months with no additional treatment and no evidence of local recurrence was seen.

(Hinyokika Kiyo 61 : 191-195, 2015)

Key word : Inflammatory liposarcoma

緒 言

炎症型脂肪肉腫は高分化型脂肪肉腫の亜型の 1 つであるが、全脂肪肉腫の 2 % と稀な組織型である¹⁾。今回、われわれは腎周囲に発生した炎症型脂肪肉腫の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 65 歳, 男性

主 訴 : 左腎腫瘍精査

家族歴 : 特記すべきことなし

既往歴 : 急性肝炎, 大腸憩室出血

現病歴 : 2013 年 7 月, 大腸憩室炎による下血の精査目的に前医で CT を施行したところ, 長径 75 mm の左腎腫瘍を指摘されて当科紹介となった。

入院時現症 : 身長 170.0 cm, 体重 69.0 kg, 血圧 150/80 mmHg, 脈拍 80/分, 腹部は平坦・軟であり, 腫瘍などの特記すべき所見は認めなかった。

入院時検査所見 : 血算・生化学検査において RBC $377 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 11.5 g/dl, Ht 34.8 % と軽度貧血を示した。尿検査では潜血陽性であったが, 尿細胞診は陰性であった。

腹部エコー : 左腎内側から尾側にかけて 75 mm の低輝度の腫瘍を認めたが, カラー Doppler では内部に血流の亢進を認めなかった。

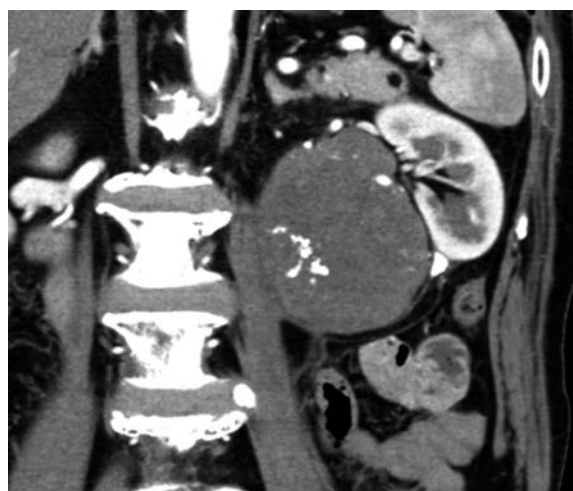


Fig. 1. Abdominal enhanced computed tomography showed a soft tissue mass (75 × 65 mm) with persistent enhancement in the peri-renal area.

腹部 CT : 左腎門部には長径 75 mm の軟部腫瘍を認めた。腫瘍の内部には石灰化を認めた。腫瘍の造影効果は遷延性に増強された。左腎の背側にも長径 20 mm の結節を認めた (Fig. 1)。

腹部 MRI : T2 強調像で不均一な信号を示す腫瘍を認めた (Fig. 2A)。腫瘍は脂肪抑制像では抑制されず (Fig. 2B), ガドリニウム造影では遷延性に造影効果が増強され (Fig. 2C), 拡散強調像では明瞭な拡散制限

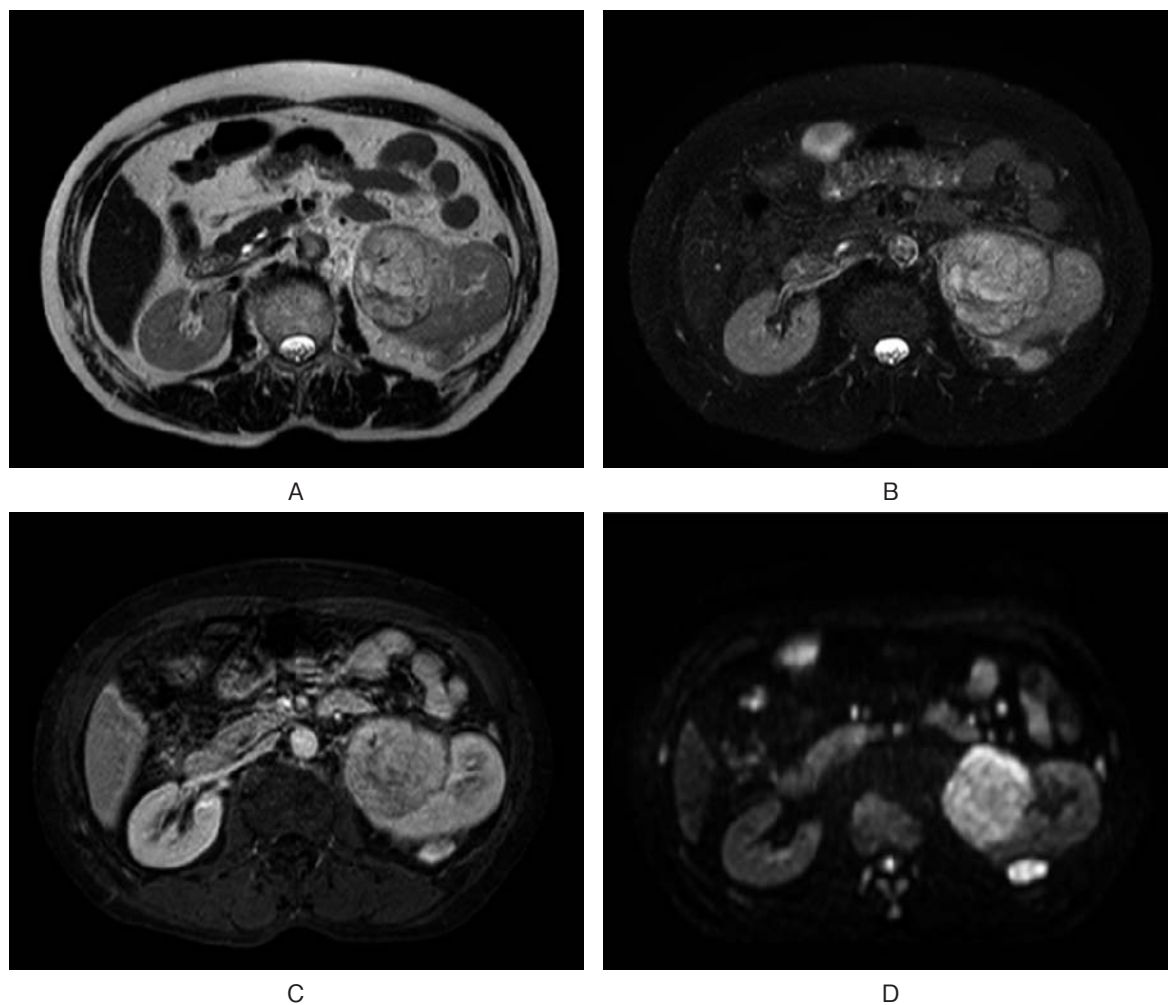


Fig. 2. Axial magnetic resonance imaging. A: T2-weighted image. B: T2WI plus fat suppression. C: Post-contrast T1WI. D: Diffusion weighted imaging.

を示した (Fig. 2D). 腎背側の結節も同様の所見であった。

以上より、後腹膜悪性腫瘍の診断で2013年10月经腹的腫瘍摘除術（開腹）、左腎合併切除を施行した。腫瘍周囲には癒着や有意なリンパ節の腫大を認めなかつ

た。手術時間は4時間49分、摘除標本は左腎を含めて510 gであり、腎門部に最大径9 cmの灰白色～黄白色の腫瘍を認めた。

病理組織学的所見：腫瘍内部は肉眼的にも色調の違いを認めた。黄白色の部分では顕微鏡的には大小不同

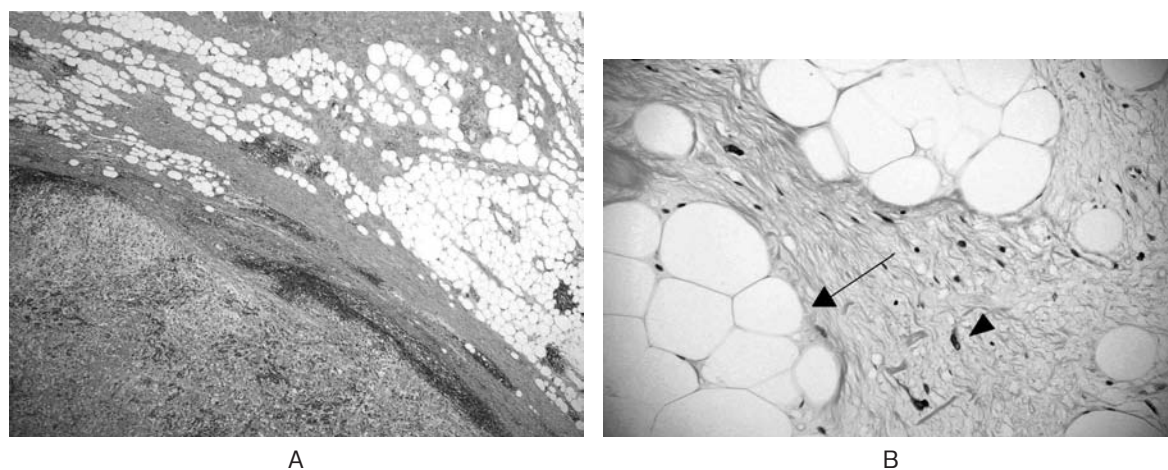


Fig. 3. Histopathology of the resected tumor (H & E). A: Lipoma-like appearance ($\times 20$). B: Atypical adipocytes (arrow) and atypical interstitial cells (arrow head) ($\times 100$).

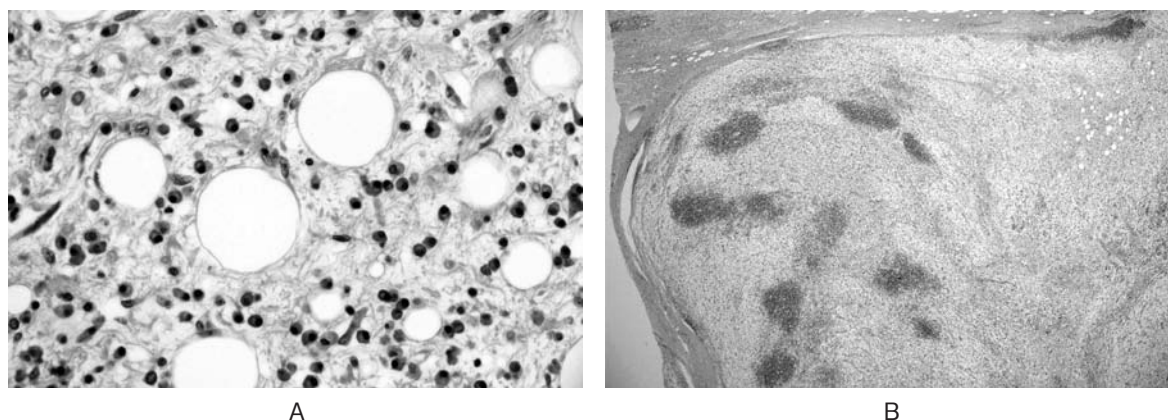


Fig. 4. Histopathology of the resected tumor (H & E). A: Plasma cells were seen in the area consisting of poorly-differentiated atypical mesenchymal cells (×400). B: lymphatic follicle (×20).

な脂肪細胞や異型間質細胞をみとめた (Fig. 3). これらは高分化型脂肪肉腫に特徴的な所見である. 免疫染色でも MDM2 と CDK4 で染色される部分を認めた. 灰白色の部分は分化傾向の乏しい異型間葉系細胞で構成され, 形質細胞浸潤, リンパ濾胞の形成を認めた (Fig. 4). このような炎症細胞浸潤は他の亜型には認められない炎症型亜型の特徴である. 以上から, inflammatory type の liposarcoma と診断した. 背側の小腫瘍についても同様の病理学的所見であった. 腎組織には異常を認めなかった.

術後経過: 術後は追加治療なしで経過観察しているが, 10カ月経過した現在, 再発を認めていない.

考 察

高分化型脂肪肉腫は全脂肪肉腫の40%を占める組織像であり, 良悪性の中間群腫瘍に分類される³⁾が, 組織学的所見によりさらに脂肪腫様型, 硬化型, 炎症型, 紡錘形細胞型の4亜型に分類される⁴⁾. 炎症型は全脂肪肉腫の2%と比較的稀であり, 1997年にはじめて数例検討がなされた^{1,5)}. 病理組織学的所見の特徴は, ①異型細胞を伴った線維性間質や, 異型脂肪細胞の存在, ②脂肪腫様もしくは硬化型の組織を認めることに加えて, ③リンパ球や形質細胞などの炎症細胞浸潤を認めることである^{1,5)}.

高分化型脂肪肉腫は一般に MRI で T1, T2 高信号, 脂肪抑制される腫瘍を認め, 内部に隔壁を認めるといった特徴的な画像所見を示すとされているが²⁾, 自験例ではこれに合致せず, 脂肪肉腫の術前診断に至らなかった.

今回われわれは自験例を含め32例の炎症型脂肪肉腫に関する報告を収集しえた^{1,5-17)}. 13例では画像所見を記載していた. CT 所見は10例であり, 多くは軟部組織陰影や脂肪腫瘍などを指摘しているが, Bhat らの報告¹²⁾では腫瘍の内部に石灰化部分を認めた. 自

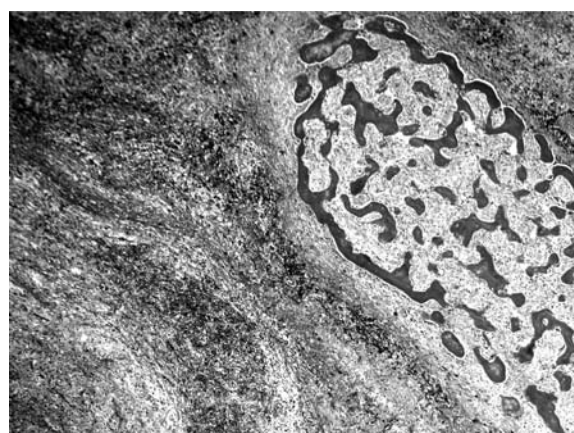


Fig. 5. Histopathology of the resected tumor (H & E). Bone tissue (×20).

験例の CT でも腫瘍内部に石灰化部分を認め, 摘除標本の病理所見では骨組織の含有を認めた (Fig. 5). 高分化型脂肪肉腫では頻度は低いものの, 軟骨や骨などの異種性分化が認められる場合があり²⁾, その結果として CT で高吸収の陰影を生じたものと推察される. MRI 所見の記載がある7例のうち3例では脂肪成分の中に非脂肪性の結節を認めたが^{6,7,17)}, 一方で Kawano らの報告⁸⁾では脂肪抑制像で抑制されない腫瘍を認め, 悪性リンパ腫もしくは炎症性偽腫瘍と術前診断している. 自験例でも同様に脂肪抑制像で抑制されず, 脂肪肉腫と術前診断しえなかった. 「非脂肪部分を一部含有する脂肪性腫瘍」という共通した画像所見を示す3例を認めた一方, 2例では「脂肪抑制されない腫瘍」という所見であり, 今回の検討では炎症型脂肪肉腫に特異的な画像所見を明らかにすることはできなかった.

治療に関しては, 高分化型脂肪肉腫の一亜型であることから, 十分なマージンをとった外科的切除が第一選択と考えられる. 術後放射線療法が脂肪肉腫の再発率を低下させたとする報告もあるが, 生存率の改善は

認めず、症例数も少ないため有効性は不明である¹⁸⁾。化学療法も確立されたものはない。局所再発に対しても手術療法を行うべきであるが、無症候性の高分化型脂肪肉腫に関しては watch-and-wait strategy も適用可能である²⁰⁾。局所治療困難な症例では、遠隔転移同様に ifosfamide や doxorubicin を用いた化学療法が推奨される^{19,20)}。また、化学療法後の軟部組織腫瘍患者に対して pazopanib の有用性が示されており²¹⁾、今後は治療選択肢の1つとなる可能性がある。高分化型脂肪肉腫全般の予後は、5年後の疾患特異的生存率が93%と良好であるが²⁰⁾、局所再発率は四肢で43%、後腹膜で91%と高頻度である²¹⁾。今回収集した報告^{1,5-17)}32例のうち9例でも再発を認めている^{1,5)}。本症例についても、定期的にCTによる画像フォローを継続する方針としている。

結 語

今回われわれは腎周囲に発生した炎症型脂肪肉腫の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は第226回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) Kraus M, Guillou L, Fletcher C, et al.: Well-differentiated inflammatory liposarcoma: an uncommon and easily overlooked variant of a common sarcoma. *Am J Surg Pathol* **21**: 518-527, 1997
- 2) 山口 洋, 長谷川 匡: 軟部肉腫の病理診断と治療. 癌と化療 **31**: 1340-1345, 2004
- 3) Tos APD and Pedetour F: World Health Organization classification of tumors. WHO classification of tumors of soft tissue and bone, Fletcher CDM, Bridge JA, Hogendoorn PCW, et al.: pp 33-36, IARC Press, Lyon, France, 2013
- 4) 長谷川 匡: 脂肪肉腫, 軟部腫瘍 腫瘍病理鑑別診断アトラス, 長谷川 匡, 小田義直. 第1版, pp 58-67, 文光堂, 東京, 2011
- 5) Argani P, Facchetti F, Inghirami G, et al.: Lymphocyte-rich well differentiated liposarcoma: report of nine cases. *Am J Surg Pathol* **21**: 884-895, 1997
- 6) 杉山健太郎, 熊谷謙治, 富田雅人, ほか: 特異なMRI 所見を呈した炎症型脂肪肉腫の1例. 整形外科と災外 **59**: 826-829, 2010
- 7) 澤崎晴武, 中村英二郎, 星 昭夫, ほか: 陰嚢内高分化型炎症性脂肪肉腫の1例. 泌尿紀要 **52**: 961-963, 2006
- 8) Kawano R, Nishie A, Yoshimitsu K, et al.: Retroperitoneal well-differentiated inflammatory liposarcoma: a diagnostic dilemma. *Radiat Med* **26**: 450-453, 2008
- 9) Sakurai T, Yuba Y, Ito R, et al.: Inflammatory liposarcoma of mixed-type: a case report. *Arch Histopathol D D* **14**: 70-72, 2007
- 10) Wu H, Harshbarger K, McCandless D, et al.: Fine-needle aspiration cytology of well-differentiated inflammatory liposarcoma: a case report with histologic follow up. *Diagn Pathol* **20**: 229-232, 1999
- 11) Willems SM, Szuhai K, Hartgrink H, et al.: CT-guided, COBRA-FISH-assisted diagnosis of well-differentiated liposarcoma (inflammatory subtype) of the retroperitoneum. *Histopathology* **51**: 422-426, 2007
- 12) Bhat SP, Prasad KHL, Shetty R, et al.: Giant inflammatory variant of well-differentiated liposarcoma of retroperitoneum: a rare case report. *Indian J Surg Oncol* **4**: 272-274, 2013
- 13) Rani U, Sharma MC, Pande GK, et al.: Well-differentiated inflammatory liposarcoma presenting as pyrexia of unknown origin. *J Assoc Physicians India* **49**: 761-763, 2001
- 14) Lim CS, Cooper CL, Delprado W, et al.: Retroperitoneal inflammatory liposarcoma in a patient with non-Hodgkin lymphoma: a report highlighting diagnostic pitfalls. *Patholog Res Int* 2010 Dec 5; 2010: 505436
- 15) Mehrotra PK, Ramachandran CS, Goel D, et al.: Inflammatory variant of a well-differentiated retroperitoneal liposarcoma: case report of a rare giant variety. *Indian J Cancer* **43**: 36-38, 2006
- 16) Sharma M, Mannan R, Bhasin TS, et al.: Giant inflammatory variant of well differentiated liposarcoma: a case report of a rare entity. *J Clin Diagn Res* **7**: 1720-1721, 2013
- 17) Lovell MO, Williams RP and Heim-Hall J: Pathological quiz case: a large recurrent thigh mass in a 79-year-old woman: inflammatory liposarcoma occurring as a component of a recurrent, well-differentiated, lipoma-like liposarcoma. *Arch Pathol Lab Med* **128**: e21-22, 2004
- 18) Yang JC, Chang AE, Baker AR, et al.: Randomized prospective study of the benefit of adjuvant radiation therapy in the treatment of soft tissue sarcomas of the extremity. *J Clin Oncol* **16**: 197-203, 1998
- 19) Eliber FC, Eliber FR, Eckardt J, et al.: The impact of chemotherapy on the survival of patients with high-grade primary extremity liposarcoma. *Ann Surg* **240**: 686-697, 2004
- 20) Dalal KM, Kattan MW, Antonescu CR, et al.: Subtype specific prognosis nomogram for patients with primary liposarcoma of the retroperitoneum, extremity, or trunk. *Ann Surg* **244**: 381-391, 2006
- 21) Weiss SW and Rao VK: Well-differentiated liposarcoma (atypical lipoma) of deep soft tissue of the extremities, retroperitoneum, and miscellaneous sites. *Am J Surg Pathol* **16**: 1051-1058, 1992
- 22) Henze J and Bauer S: Liposarcomas. *Hematol Oncol Clin North Am* **27**: 939-955, 2013
- 23) van der Graaf WT, Blay JY, Chawla SP, et al.: Pazopanib for metastatic soft-tissue sarcoma (PALETTE):

a randomised, double-blind, placebo-controlled phase
3 trial. *Lancet* **379** : 1879–1886, 2012

(Received on September 22, 2014)
(Accepted on December 26, 2014)