

膀胱後部肉腫（横紋筋肉腫）の1例

岩手医科大学医学部泌尿器科学教室（主任：大堀 勉教授）

萬谷 嘉明・大日向 充 ・瀬尾喜久雄* ・高田 耕**

小倉 裕幸・高橋 崎三***・佐々木秀平****・久保 隆

岩手医科大学医学部小児科学教室（主任：若生 宏教授*****）

谷 口 繁*****

岩手医科大学医学部病理学第1講座（主任：矢川寛一教授）

伊藤 俊一・矢川 寛一

RETROVESICAL SARCOMA (RHABDOMYOSARCOMA):
REPORT OF A CASE AND A REVIEW OF 46 CASES IN JAPANYoshiaki BANYA, Mitsuru OHINATA, Kikuo SEO, Koh TAKADA,
Hiroyuki OGURA, Sakizo TAKAHASHI, Shuhei SASAKI and
Takashi KUBO*From the Department of Urology, School of Medicine, Iwate Medical University
(Director: Prof. T. Ohori)*

Shigeru TANIGUCHI

*From the Department of Pediatrics, School of Medicine, Iwate Medical University
(Director: Prof. H. Wako)*

Shunichi ITO and Kanichi YAGAWA

*From the Department of Pathology I, School of Medicine, Iwate Medical University
(Director: Prof. K. Yagawa)*

The patient was a 2-year-old boy, who was brought to our clinic with the chief symptom of urinary retention. We suspected retrovesical tumor by digital examination, intravenous pyelography and retrograde cystography. Surgery was performed and the bladder and prostate including the tumor were removed. Ureterocutaneostomy was constructed on both sides. The pathohistological diagnosis was rhabdomyosarcoma (embryonal type). Thereafter, chemotherapy and irradiation were applied, but the patient died of cachexia which was clinically caused by a local recurrence, fourteen months after the operation. Forty-six cases of retrovesical sarcoma were collected from the recent Japanese literature, and reviewed.

Key words: Retrovesical sarcoma, Rhabdomyosarcoma

*現・八戸赤十字病院泌尿器科

**現：岩手県立中央病院泌尿器科

***現：岩手県立久慈病院泌尿器科

****現：秋田大学医学部泌尿器科学教室

*****現：岩手医科大学附属病院高次救急センター

*****現：八戸赤十字病院院長

緒 言

膀胱後部肉腫とは、膀胱後部に発生した肉腫の総称で、原発臓器のあきらかな肉腫を除外したものであり、1926年 Young¹⁾ の命名以後独立した疾患として扱われている。本疾患はきわめてまれであり、本邦における報告例は1949年落合ら²⁾ の細網肉腫の1例を最初として、われわれが文献上調べたかぎりでは、自験例を含めて46例を数えるのみである。最近、われわれは本症の1例を経験したので、ここにその概要とあわせて若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：S.M.，2歳，男児

初診：1977年6月9日

主訴：尿閉

家族歴および既往歴：特記事項なし

現病歴：1977年4月初め頃、突然、肉眼的血尿が出現した。頻尿、排尿痛などの自覚症状はともなわなかった。某医にて膀胱炎として投薬を受け、3日間位で血尿は消失した。その後、同年5月中旬より、排尿困難が出現し、さらに6月9日には尿閉となったので、当科を紹介され入院した。

現症：顔貌は苦悶様で、眼瞼および眼球結膜に貧血・黄疸は認めない。体格・栄養中等度。全身の表在リンパ節の腫張は認めない。胸部は理学的に異常を認めない。腹部は平坦で肝、脾、腎および異常腫瘤を触知しないが、下腹部に膀胱を膨満した腫瘤として触知した。外性器、四肢には異常を認めない。直腸診で前立腺後方にくるみ大の軟い腫瘤を触知した。

入院時検査成績：血液一般検査；赤血球数 $467 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Hb 12.6 g/dl，Ht 36.5%，白血球数 $8,700/\text{mm}^3$ ，白血球分類異常なし，血小板数 $32.2 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，出血時間3分，凝固時間8分，血沈 11 mm/1時間。血液化学検査；BUN 11.1 mg/dl，creatinine 1.0 mg/dl，Na 143.5 mEq/l，Cl 109.0 mEq/l，Ca 4.2 mEq/l，total-protein 7.2 g/dl，Alb. 55.1%， α_1 -glob. 5.8%， α_2 -glob. 14.8%， β -glob. 9.0%， γ -glob. 15.0%，A/G 比1.22，GOT 26 u.，GPT 8 u.，LDH 438 u.，total-bilirubin 0.8 mg/dl，alkali-phosphatase 18.2 u.，acid-phosphatase 1.0 u.，尿酸 9.2 mg/dl。血清学検査；GRP (±)，RA (－)，ASO 12 u.，Hbs-Ag (－)，Wa-R (－)。尿所見；外観は黄色混濁，pH 6.0，蛋白 (+)，糖 (－)，沈渣は赤血球 10~20/hpf，白血球 40~50/hpf，上皮細胞 0~1/hpf，桿菌 (卅)，結晶 (+)，尿培養にて *E. coli* (卅)，VMA

は試験管法 (－)，試験紙法 (－)。

X線学的検査：腎膀胱部単純撮影にて結石および石灰化像を認めない。排泄性腎盂造影にて左水腎症および膀胱底部挙上を認めた (Fig. 1)。膀胱造影にて膀胱底部挙上および左外後方からの圧排によると思われる陰影欠損を認めた (Fig. 2)。

以上の検査結果より、膀胱後部腫瘍を疑い同年6月16日、全身麻酔下にて手術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開を置き、膀胱を開くと、内尿道口を中心にしてほぼ全周を取り囲む直径約4 cmの腫瘍を認めた。さらに膀胱内より前立腺部尿道を触診すると、中より腫瘍片が圧出された。迅速病理組織検査にて悪性像が確認されたので、腫瘍を含めて膀胱・前立腺全摘出術および両側尿管皮膚瘻術を施行した。腫瘍は Fig. 3 のごとく、膀胱後部に位置し、膀胱を前上方へ、前立腺を下方へ圧排かつ浸潤し、精囊腺は腫瘍と一塊となり識別できなかったが、他の周囲組織との癒着は認められなかった。

摘出標本：腫瘍はくるみ大で軟らかく、灰白色を呈した光沢のある被膜により完全に包まれていた。剖面では帯黄褐色、充実性脂肪様で、茶褐色調の強い壊死に陥ったと思われるもろい組織を混じていた。腫瘍は膀胱壁および前立腺に浸潤しており、膀胱頸部で膀胱内腔へ侵入していた。精囊腺は腫瘍と一塊となっており識別できなかった (Figs. 4~6)。

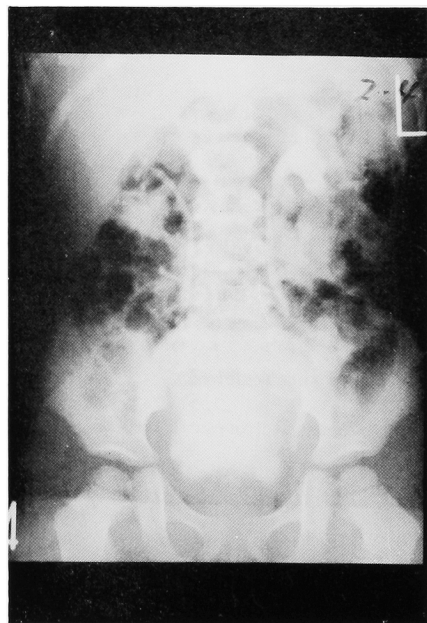


Fig. 1. 排泄性腎盂造影
左水腎症および膀胱底部挙上を認める



Fig. 2. 膀胱造影
膀胱底部拳上および左外後方からの圧排によると思われる陰影欠損を認める

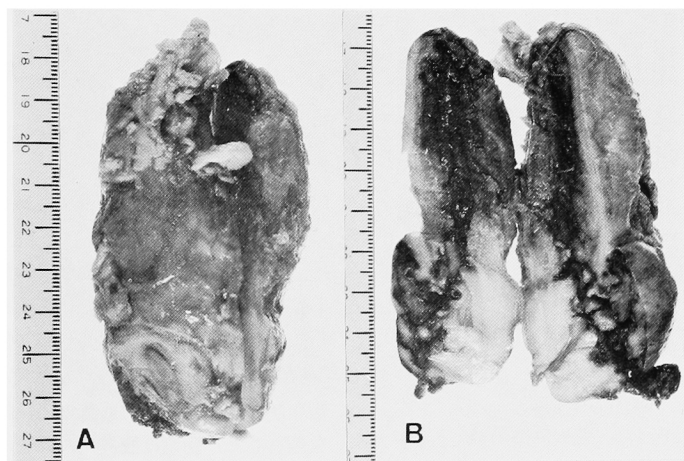


Fig. 4. 摘出標本
A：前面からみた膀胱と前立腺で腫瘍はみえない
B 後面からの割面で腫瘍はくるみ大で被膜により完全に被われている。精嚢腺は腫瘍と一塊となっており識別できない

病理組織学的所見：円形ないし紡錘形細胞が密に増殖し、ところにより胞巣状パターンをうかがわせた。腫瘍細胞はかなり多形性で、不正多稜形の胞体をもって連なり、しばしば胞体に空胞を有し、あるいは隙をもっている部位では粗網状構造を呈していた (Fig. 7)。また、しばしばやや大型で、胞体が好酸性に染まる円形ないし橢円形のいわゆる丸細胞に相当するものが認められた。また、胞体がのびて、そこに PTAH 染色で横紋をみいだすことができた。核は偏在し、円形ないし不正類円形を示すものが多いが、やはり多形ないし異型性で、胞体の多形とあいまって奇怪な形態

を示すものも多く認められた (Fig. 8)。以上の所見から胎児性横紋筋肉腫と診断した。

術後経過：術後3日目よりイレウス症状が出現したため、開腹し腸管の癒着剥離術を施行した。また、このころより緑膿菌による尿路感染症を併発し、発熱が持続し全身状態が悪化したが、術後60日目頃より全身状態もほぼ術前の状態まで回復したので、本学小児科に兼科入院とし、術後89日目より actinomycin D, adriamycin, cyclophosphamide, vincristine の多剤併用による抗腫瘍剤投与を開始した。薬剤の投与方法および投与量は、Fig. 9 に示したが、actinomycin

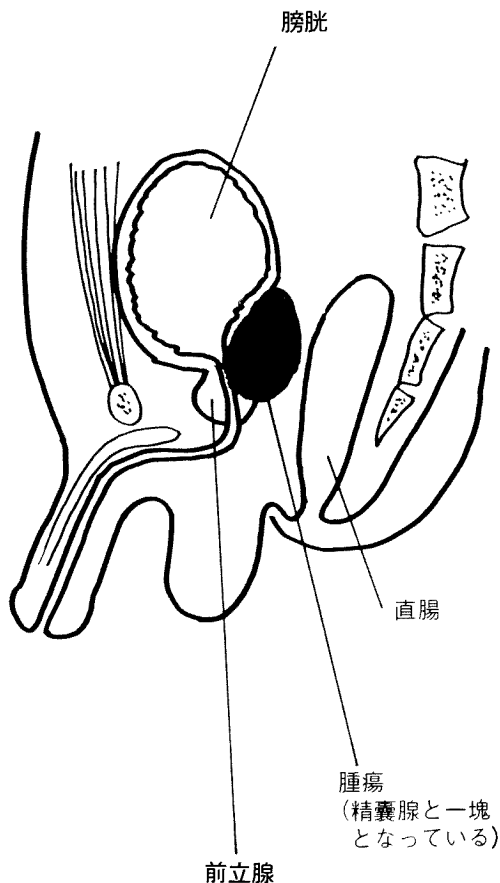


Fig. 3. 腫瘍存在部位を示す模式図

腫瘍は膀胱後部で前立腺の上に位置し、膀胱を前方に前立腺を下方に圧排かつ浸潤していた。精嚢腺は腫瘍と一塊となり識別できなかった。他の周囲組織との癒着は認められなかった。

D 190 $\mu\text{g}/\text{day}$ を5日間連日投与し総量 950 μg , adriamycin 10 mg/day の3日間連日投与を2回施行し総量 60 mg , cyclophosphamide 600 mg/day を初回投与後2週間間隔を置いて再投与し総量 1,200 mg , vincristine 0.8 mg/day を月1回の割で2度、ついで週1回の割で4度投与し総量 4.8 mg を投与した。また、リニアック照射も 100 rads/day を30~40回、総量 3,000~4,000 rads を目標として開始したが、食欲不振、全身倦怠感などの副作用がいちじるしく、8回の照射（総量 800 rads ）で中止せざるをえなかった。抗腫瘍剤投与の継続を考えたが、薬剤投与のたびに発熱、食欲不振、悪心、嘔吐などが出現し、体重が減少してきたこと、また家族の強い希望もあることから、術後220日目に退院となった。なお、退院

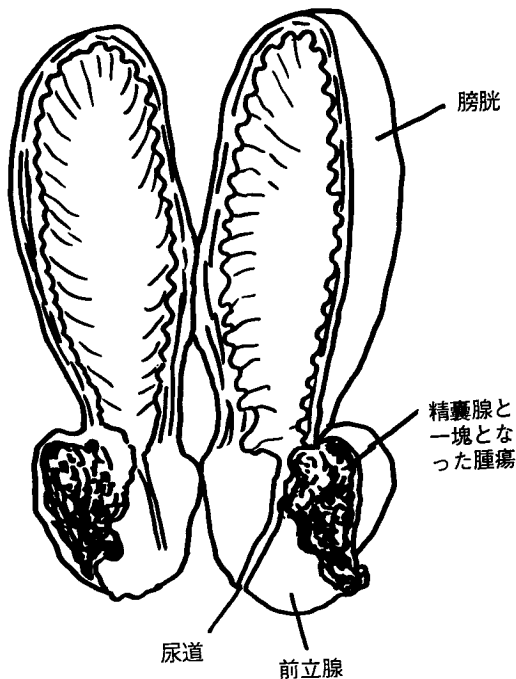


Fig. 5. 摘出標本

Fig. 4. B の模式図

時には臨床的に再発や転移を疑わせる徴候を認めなかった。

退院後外来通院にて定期的に検診を続けたが、主として尿路管理をおこない、積極的な抗腫瘍剤投与は施行しなかった。1978年5月12日（術後11ヵ月目）の外来受診の際に、臍左下方に鶏卵大、円形の可動性の腫瘤を触知したため、再入院の上、同年6月12日開腹術を施行した。腫瘍は腹腔内には認められず、後腹膜腔より発生しており、手拳大、充実性で被膜に包まれていた。周囲組織との癒着がいちじるしく腫瘍の摘出が不可能であるため、生検だけにとどめた。病理組織学的には横紋筋肉腫であった。術後 vincristine 0.25 mg/day の投与を開始したが、腫瘍は徐々に増大傾向を呈し小児頭大まで達し、呼吸困難、食事摂取困難などの圧迫症状が出現し、同年8月5日（術後1年2ヵ月）悪液質で他界した。遠隔転移の有無については、剖検できなかったため断定はできないが、臨床的には局所再発以外に全身的な転移を認めなかった。

考 察

膀胱後部に発生し、膀胱を圧迫して排尿困難などをきたす腫瘍には、直腸腫瘍、子宮腫瘍、前立腺腫瘍および転移性腫瘍など特定臓器から発生するもののほか、原発臓器の不明なものが認められる。1926年

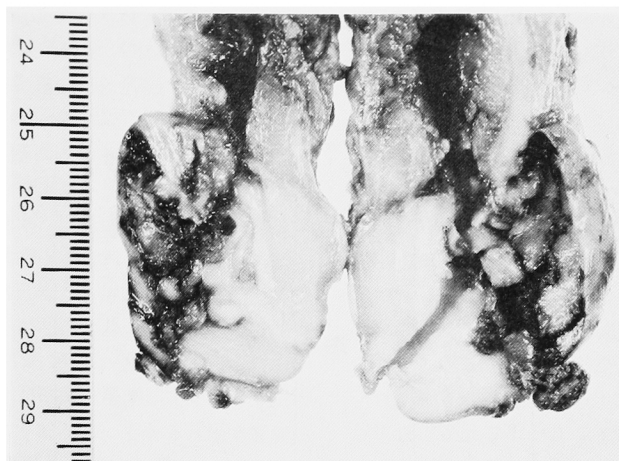


Fig. 6. 摘出標本 (Fig. 4. B の腫瘍部分の拡大)
腫瘍は膀胱壁および前立腺に浸潤しており、膀胱頸部で膀胱内腔へ浸入している

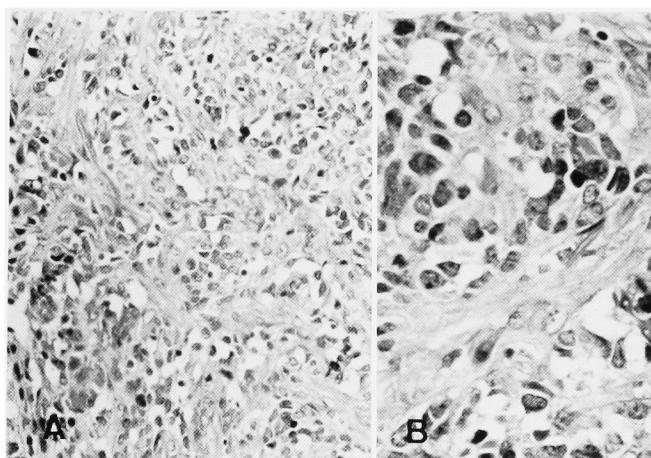


Fig. 7. 腫瘍組織像 A. やや多形性の類円形ないし多角形の腫瘍細胞が密に増殖し、胞巣状パターンをうかがわせるところもある。しばしば胞体が空胞状をなす。H.E. 染色 B. 強拡大像 H.E. 染色

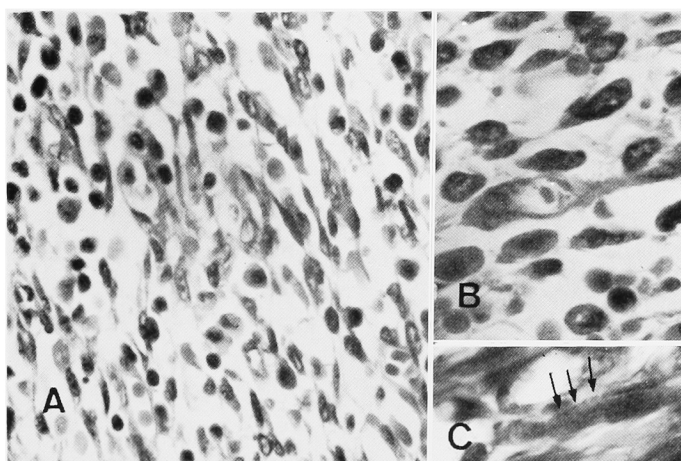


Fig. 8. 腫瘍組織像 A. 腫瘍細胞は比較的胞体に富み、いわゆる丸細胞に近い像を示す。H.E. 染色 B. 強拡大像 H.E. 染色 C. PTAH 染色で横紋を認める

一回投与量	投 与 方 法			総 量
	1977年 9月	10月	11月	
Actinomycin D 190 μ g (15 μ g/kg)	↓12 ↓13 ↓14 ↓15 ↓16			950 μ g
Adriamycin 10mg (20mg/m ²)		↓3 ↓4 ↓5	↓20 ↓21 ↓22	60 mg
Cyclophosphamide 600mg (1200mg/m ²)			↓7 ↓28	1200 mg
Vincristine 0.8mg (1.5mg/m ²)		↓17	↓10 ↓7 ↓14 ↓21 ↓28	4.8 mg
Linac 100rads 3000 ~ 4000 を目標		↓26 ↓27 ↓28 ↓29 ↓30	↓6 ↓7 ↓8 ↓9 ↓10	800 rads

Fig. 9. 術後施行した化学療法と放射線療法

Young¹⁾ は、膀胱後部において特定臓器と無関係に発生する肉腫を、膀胱後部肉腫 (Retrovesical Sarcoma) と命名し、以後独立した疾患として扱われている。膀胱後部肉腫の発生形式について、Young¹⁾ は、「膀胱後部で前立腺の上、精囊腺の間に発生し、膀胱を前方に、直腸を後方に、前立腺を下方に圧排発育していく。精囊腺はふつう腫瘍の後面に位置するが、腫瘍と膀胱との間にはさみこまれることもあり、ときに腫瘍に完全に埋没されることもある。前立腺の周囲に浸潤するが組織内への浸潤は遅い。膀胱壁は腫瘍により前方へ圧排されるが粘膜は正常であることが多い。晩期には腫瘍細胞が筋層に浸潤してあたかも膀胱壁に発生した肉腫ようになる。しかし腫瘍は膀胱内腔へ侵入する前に骨盤腔の上方へと発育していく。」と述べているが、膀胱を圧迫して排尿困難などの臨床症状が出現し、患者が受診した際には、肉腫がすでに相当増大しており、原発臓器の決定、とくに前立腺や精囊腺原発の肉腫との鑑別がきわめて困難な場合が少なくないようである。1936年 Young²⁾ は、前立腺肉腫について、原発性前立腺肉腫と前立腺以外の周囲組織 (膀胱後部組織) から発生して二次的に前立腺を浸潤した肉腫との鑑別は困難なものが多いとし、彼の経験したこの種の肉腫22例を集め、第1群：原発性前立腺肉腫 (3例)、第2群：前立腺および膀胱後部を占拠する肉腫 (11例)、第3群：前立腺は侵されずに両側精囊腺部に浸潤する肉腫 (5例)、第4群：前立腺・精囊腺ともに無関係に、膀胱後部、骨盤壁に密接した肉腫 (3例) の4群に分類し、第2群以下を膀胱後部肉腫としている。また、1946年 Lazarus³⁾ は原発性精囊腺肉腫に関する詳細な文献的考察をおこない、従来より原発性精囊腺肉腫として報告されている症例のうちで、確実に精囊腺原発と断定できるものは2例しかなく、他のほとんどの症例では臨床的にはもちろん、手術あるいは剖検で、さらには病理組織学的にさえも確実に精囊腺原発か否かを決定することが不可能であるため、精囊腺肉腫という病名は不適当であり、この部位に発生した肉腫は膀胱後部肉腫として総括した方がよいとし、本邦においても落合⁵⁾ がこの説を支持している。われわれの症例では、肉腫は Figs. 3～6 のごとく、膀胱後部において前立腺の上から発生し、膀胱を前方へ、前立腺を下方に圧排かつ浸潤していた。両側精囊腺は肉腫に完全に埋没され識別できなかったが、他の周囲組織の癒着などは認められず、Young^{1,3)}、Lazarus³⁾ および落合⁵⁾ のいうところの膀胱後部肉腫に相当するものと判断した。

膀胱後部肉腫は、きわめてまれな疾患で、本邦にお

ける報告例も、1949年落合ら²⁾ の細網肉腫の1例を最初として、その後諸家⁶⁻¹⁶⁾ により集計されているが、今回われわれが渉猟しえたかぎりでは、自験例 (42例目) を含めて、Table 1 に示したごとく46例を数えるのみである。なお、前述のごとく膀胱後部肉腫と前立腺および精囊腺の肉腫との関係が、その定義や分類の上で問題とされかつ強調されていることより、膀胱後部肉腫が男子特有の疾患であるかのように思われがちであったためか、従来より女子例は統計から除外されており、その正確な実態はつかみがたく、われわれの集計 (Table 1) でも女子例は含めなかった。

膀胱後部肉腫の組織像および年齢分布について Table 2 に示した。さまざまな組織像を呈する肉腫が発生しているが、46例中筋肉腫の占める割合が20例 (43.5%) ともっとも多く、ついで悪性リンパ腫10例 (21.7%)、単純肉腫8例 (17.4%) と続き、これら3者が計38例 (82.6%) と大部分を占め、他は線維肉腫3例 (6.5%)、血管肉腫2例 (4.3%)、粘液肉腫、脂肪肉腫、軟骨肉腫各1例 (2.2%) であった。年齢分布をみると、肉腫は乳幼児から高齢者まで広い範囲で発生しており、特に好発年齢はないようであるが、0～9歳、30～39歳がともに9例 (19.6%) ともっとも多く2双性のピークを示す形となった。組織像と年齢との関係についてみると、とくに筋肉腫において、横紋筋肉腫は0～29が8例 (80%)、平滑筋肉腫は30～59が9例 (90%) であり、前者は若年者に、後者は壮年者に多い傾向がみられる。Miller^{17,18)} は15歳以下の小児に発生した腫瘍のうち、横紋筋肉腫は白血病、神経膠腫、リンパ腫、神経芽細胞腫、Wilms 腫瘍、骨肉腫について7番目に多く、またその発生部位は頭頸部領域について泌尿生殖器領域が2番目に多いと述べ、また、Grosfeld ら¹⁹⁾ は、横紋筋肉腫が小児の soft tissue sarcoma のうちでもっとも多いと述べている。膀胱後部肉腫においても、15歳以下の小児例は12例であり、そのうち自験例を含めて7例 (58.3%) が、横紋筋肉腫であり、また横紋筋肉腫全体においても10例のうち15歳以下のものは7例 (70%) を占めており、この横紋筋肉腫の発生頻度が小児において比較的高いことが、先に述べた膀胱後部肉腫の年齢分布が2双性のようなパターンを示す一因になっていると思われる。

横紋筋肉腫は臨床病理学の立場から、Horn ら²⁰⁾ により (1) 多形細胞型横紋筋肉腫 pleomorphic rhabdomyosarcoma, (2) 胞巣状横紋筋肉腫 alveolar rhabdomyosarcoma, (3) 胎児性横紋筋肉腫 embryonal rhabdomyosarcoma, (4) ぶどう状横紋筋肉腫

Table 1. 膀胱後部肉腫本邦報告例

症 例	報告者	文 献	年 齢	組織学 的所見	症 状	精 の う との関係	治		療		転 帰
							手 根治	術 対症	放射線	化学	
1	落合・ほか	日泌尿会誌, 40:111, 1949.	25	細網肉腫	軽度血尿 排尿困難	記載なし			X線		2ヵ月後 死亡
2	市川	日泌尿会誌, 41:197, 1950.	21	細網肉腫	排尿痛 無尿 全身浮腫 意識混濁	浸潤あり			尿路変更		入院 1ヵ月後 死亡
3	黒川・ほか	外科の領域, 1:356, 1953.	55	細網肉腫	無尿 腹部膨満感 全身浮腫	関係なし			尿路変更		入院 1ヵ月後 死亡
4	斉藤・ほか	日泌尿会誌, 44:200, 1953.	13	小円形 細胞肉腫	下腹部腫瘍 排尿困難 全身衰弱	記載なし	全摘 不能		X線		術後 13日目 院退
5	伊藤	臨皮泌, 7:220, 1953.	60	細網肉腫	頻尿 排尿困難 排尿痛 顔面浮腫	浸潤あり			尿路変更	X線 ホルモン	入院 3ヵ月後 死亡
6	大矢	臨皮泌, 11:35, 1957.	13	横紋筋肉腫	尿閉 小骨盤内腫瘍 下肢麻痺	不明	全摘 不能		X線	抗腫瘍剤	入院 5ヵ月後 死亡
7	荒尾・ほか	皮と泌, 20:105, 1958.	3	小円形細胞 肉腫	尿閉 恥骨上に小 鶏卵大腫瘤	記載なし			尿路変更	X線 抗腫瘍剤	入院 3ヵ月後 死亡
8	坂本・ほか	皮と泌, 20:158, 1958.	47	錐錐形 細胞肉腫	排尿困難 便秘	不明			人工肛門	X線 抗腫瘍剤	入院 4ヵ月後 死亡
9	前川	泌尿紀要, 4:175, 1958.	30	線維肉腫	左下肢神経 痛様疼痛, 排尿困難	関係なし			試験開腹		

10	浜・ほか	日外会誌, 60:178, 1959.	3 4	平滑筋肉腫	骨盤腔を充満した巨大な腫瘍	関係なし	全摘			
11	小山・ほか	日泌尿会誌, 51:226, 1960.	8	小円形細胞肉腫	排尿困難, 肛門周囲硬結, 最径リンパ節腫脹	記載なし				3 カ月後死亡
12	高安・ほか	最新医学, 17:817, 1962.	5 7	横紋筋肉腫	下腹部腫瘤, 排尿および排便困難	関係なし	全摘	術前 ⁶⁰ C o		術後2 カ月退院 8 カ月再発
13	山田	臨産泌, 17:397, 1963.	5 1	細網肉腫	排尿困難, 排尿痛, 下腹部緊満感	不明	全摘不能	X 線	抗腫瘍剤	入院3 カ月後死亡
14	高安・ほか	癌の臨床, 10:120, 1964.	4 0	リンパ肉腫	下腹部腫瘤, 排尿困難	関係なし		⁶⁰ C o		入院4 カ月後死亡
15	武田・ほか	日泌尿会誌, 55:502, 1964.	3 7	平滑筋肉腫	尿閉, 下腹部巨大腫瘤	記載なし		人工肛門	⁶⁰ C o	入院中死亡
16	武田・ほか	日泌尿会誌, 55:508, 1964.	3 3	細網肉腫	頻尿, 残尿感, 排尿困難, 下腹部腫瘤, および疼痛	記載なし		試験開腹	⁶⁰ C o	抗腫瘍剤
17	松本・ほか	日泌尿会誌, 56:1149, 1965.	3 6	平滑筋肉腫	排尿困難	記載なし		試験開腹		抗腫瘍剤
18	千葉	日泌尿会誌, 57:309, 1966.	2	横紋筋肉腫	排尿困難, 腹部膨隆	関係なし		⁶⁰ C o		入院2 カ月後死亡
19	姉島	日泌尿会誌, 58:132, 1967.	4 3	平滑筋肉腫	排尿困難, 両下肢神経痛様疼痛	記載なし				死亡

症 例	報 告 者	文 献	年 齢	組織学 的所見	症 状	精 の う との関係	治 療				転 帰
							手 術		放射線	化学	
							根治	対症			
20	斯波・ほか	日泌尿会誌, 58:356, 1967.	64	線維肉腫	頻尿, 排尿困難, 数回の尿閉 と便秘	関係なし	全摘	両側尿管皮膚瘻 人工肛門			術後 3ヵ月目 健在
21	猪野毛・ほか	日泌尿会誌, 58:359, 1967.	69	平滑筋肉腫	腰痛, 排尿困難, 頻尿	記載なし			⁶⁰ Co		死亡
22	大北・ほか	日泌尿会誌, 58:888, 1967.	45	線維肉腫	排尿障害 腰痛	記載なし	全摘	両側尿管皮膚瘻	⁶⁰ Co		術後 2年11ヵ月目 生存
23	大北・ほか	日泌尿会誌, 58:888, 1967.	41	小円形 細胞肉腫	腰痛 頻尿 下腹部腫痛 便秘	記載なし	骨盤内 臓器全摘	両側尿管皮膚瘻 人工肛門	⁶⁰ Co		術後 170日後 肺転移 で死亡
24	武田・ほか	日泌尿会誌, 58:894, 1967.	54	血管内皮腫 (血管肉腫)	腰痛, 会陰 部痛, 排尿 痛, 排尿・ 排便困難	浸潤あり	全摘				
25	鈴 木	日泌尿会誌, 59:642, 1968.	0.7	横紋筋肉腫	下腹部腫痛	記載なし	腫瘤摘除			抗腫瘍剤	
26	酒井・ほか	臨 泌, 23:217, 1969.	39	細網肉腫	右鼠径部および 右下肢腫脹, 頻尿	関係なし	全摘不能			抗腫瘍剤	術後3ヵ月後 死亡
27	三品・ほか	泌尿紀要, 15:854, 1969.	50	平滑筋肉腫	排尿困難 下腹部有痛性 腫瘤, 発熱	関係なし	全摘		⁶⁰ Co		術後7ヵ月目 健在
28	石堂・ほか	日泌尿会誌 61:516, 1970	3.9	横紋筋肉腫	排尿困難, 下腹部腫痛, 便秘 イレウス	記載なし		人工肛門			死亡
29	大橋・ほか	日泌尿会誌 64:859, 1973.	36	粘液肉腫	下腹部腫痛	関係なし	全摘				術後1年2ヵ月目 健在

30	安食・ほか	日泌尿会誌 65: 63, 1974.	1. 6	未分化 細胞肉腫	下腹部腫瘍 排尿困難	記載なし	全摘不能	人工肛門 尿路変更 (両側尿管皮膚瘻)	60 Co	抗腫瘍剤	6ヵ月後 死亡
31	土 田	日泌尿会誌 65: 257, 1974.	1 1	横紋筋肉腫	腹部腫瘍 頻尿	記載なし	全摘				
32	平 岩	日泌尿会誌 65: 340, 1974.	2 9	紡錘形 一部多形 細胞肉腫	血尿 頻尿 下痢	不明	全摘不能	尿路変更 (左腎瘻, 右尿管皮膚瘻)	リニアック		術後27日後 死亡
33	津久井・ほか	日泌尿会誌 65: 600, 1974.	6 5	横紋筋肉腫	左下肢疼痛, 無 尿	記載なし		尿路変更 (尿管皮膚瘻)		抗腫瘍剤	入院41日後 死亡
34	浜・ほか	日泌尿会誌 68: 91, 1977.	1. 6	血管内皮腫 (血管肉腫)	排尿, 排便障害 腹部膨満 歩行障害	記載なし	全摘不能	試験切除			術後5週間 後死亡
35	松岡・ほか	西日泌尿 39: 89, 1977.	5 8	平滑筋肉腫	頻 尿	関係なし	腫瘍摘出		術前 リニアック		術後3ヵ月目 健在
36	松岡・ほか	西日泌尿, 39: 574, 1977.	4 7	平滑筋肉腫	頻 尿 小骨盤腔を占拠 する大きな腫瘍	記載なし		腫瘍生検	リニアック		外来にて 観察中
37	鈴 木	西日泌尿 39: 574, 1977.	7 3	脂肪肉腫	排尿困難	浸潤なし	全摘				
38	森下・ほか	西日泌尿 39: 687, 1977.	2 4	悪性リンパ腫 (細胞肉腫)	排尿困難, 左殿部より左下 肢にわたる疼痛	記載なし			リニアック	抗腫瘍剤	5年2ヵ月目 健在
39	森下・ほか	西日泌尿 39: 687, 1977.	3 3	悪性リンパ腫 (不 明)	排尿困難 便秘, 血便, 下腹部腫瘍	記載なし			60 Co	抗腫瘍剤	3年11ヵ月目 健在
40	柏原・ほか	泌尿紀要 24: 71, 1978.	2 0	横紋筋肉腫	発熱, 下腹部痛, 排尿痛	関係なし	全摘不能	試験開腹		抗腫瘍剤	術後3ヵ月後 悪液質で死亡

症 例	報告者	文 献	年 齢	組織学 的所見	症 状	精 の う との関係	治 療		放射線	化 学	転 帰
							手 術 根治	術 対症			
41	石川・ほか	泌尿紀要 24: 77,1978.	3 1	紡錘形 細胞肉腫	頻尿 排尿困難	記載なし	全摘不能	試験開腹	60 Co	抗腫瘍剤	術後18ヵ月後 死亡
42	自験例	日泌尿会誌 70: 261,1979.	2	横紋筋肉腫	排尿困難 尿閉	肉腫と 一塊となり 識別不能	全摘	両側尿管 皮膚瘻	リニアック	抗腫瘍剤	術後14ヵ月後 再発, 悪液質で 死亡
43	郡・ほか	日泌尿会誌 70: 605,1979.	4 9	軟骨肉腫	排尿困難	記載なし	骨盤内臓器 全摘	回腸導管 人工肛門	術後照射		術後5ヵ月目 健在
44	郡・ほか	日泌尿会誌 70: 605,1979.	4	横紋筋肉腫	排尿困難 下肢痛	記載なし	骨盤内臓器 全摘	回腸導管 人工肛門			術後1ヵ月目 健在
45	吉田・ほか	泌尿紀要 26: 1031,1980	4 8	平滑筋肉腫	尿閉	関係なし	腫瘍全摘			抗腫瘍剤	術後6ヵ月目 健在
46	守屋・ほか	臨 泌 35: 587,1981.	5 3	平滑筋肉腫	排尿困難 便秘	関係なし	骨盤内臓器 全摘	S状結腸導管 人工肛門			術後10ヵ月目 健在

Table 2. 組織像と年齢

組織学的所見		年 齢								計
		0—9	10—19	20—29	30—39	40—49	50—59	60—69	70以上	
筋 肉 腫	横紋筋肉腫	5	2	1			1	1		10
	平滑筋肉腫				3	3	3	1		10
悪性リンパ腫	細網肉腫			3	2		2	1		8
	リンパ肉腫					1				1
	不 明				1					1
単 純 肉 腫	小円形細胞肉腫	2	1			1				4
	紡錘形細胞肉腫			1	1	1				3
	未分化細胞肉腫	1								1
線 維 肉 腫					1	1		1		3
血 管 肉 腫		1					1			2
粘 液 肉 腫					1					1
脂 肪 肉 腫									1	1
軟 骨 肉 腫						1				1
計		9	3	5	9	8	7	4	1	46

Table 3. 臨床症状

症 状	症 例 数
排 尿 困 難	29
下 腹 部 腫 瘤	17
頻 尿	11
便 秘	9
尿 閉	6
排 尿 痛	5
下肢の神経痛様疼痛	5
腹 部 膨 満 感	5
腰 痛	4
無 尿	3
血 尿	2
鼠 径 リ ン 巴 節 腫 脹	2
歩 行 障 害	2
全 身 浮 腫	2

botryoid rhabdomyosarcoma の4型に分類されている。しかし最近では(4)が組織学的に(3)に同一であること、および中胚葉性混合腫瘍を含むぶどう状肉腫と(4)の関係が十分あきらかでないため、(4)を(3)に含めて3型に分類されることが多い²¹⁾。以上の諸型に共通した横紋筋肉腫の組織学的特徴として、赤崎²²⁾は、(1)横紋の存在、(2)myofibrilの存在、(3)糖原の存在の3点をあげており、このうち横紋像を証明できれば診断は確実であるが、これを欠く例も少なくなく、また検出もきわめて難かしいため、他の肉腫との鑑別が困難なことも多い。われわれの症例では、PTAH染色で横紋像が証明され(Fig. 8C)、胎児性横紋筋肉腫と診断することができた。

臨床症状についてはTable 3に示したが、排尿困難が圧倒的に多く、下腹部腫瘤、頻尿がこれにつづいている。その他に便秘、尿閉、排尿痛、下肢の神経痛様疼痛、腹部膨満感などがみられるが、いずれも肉腫が発育し周囲を浸潤圧迫してはじめて出現してくるもので、肉腫そのものに特有な症状はなにひとつとしてなく、早期発見が難かしい大きな要因となっている。しかし、受診時にすでに下腹部腫瘤を認めた症例を文献的に年代別にみると、1950年代では4/9例(44.4%)、1960年代では7/17例(41.2%)、1970年代

では6/17例(35.3%)、1980年代では0/2例(0%)と年代が進むにつれて減少してきており、またそれとは逆に肉腫全摘例は、各年代でそれぞれ1/9例(11.1%)、7/17例(41.2%)、7/17例(41.2%)、2/2例(100%)と増加してきている。これは医学的診断治療技術の進歩に加え、社会的に排尿困難、頻尿、血尿などの排尿異常に対する医学知識が普及し、患者がより早期に自覚症状に気づき受診するようになってきたためではないかと思われる。われわれの症例では、腫瘍そのものがくるみ大とそれほど大きくないが、剖面(Figs. 4~6)で膀胱頸部より膀胱内腔へ浸潤しており、これが血尿、排尿困難さらに尿閉の原因となり、比較的早期に発見することができたものと思われる。最初に血尿をきたした時点で、単なる膀胱炎として治療するだけでなく、その原因を膀胱鏡などにより究明しておけばより早期に発見しえたかもしれない。

以上のように本疾患には、特有の症状というものがなく、症状が自覚されたときには肉腫が相当増大しているような状態であることが多く、治療についても46例中記載のあきらかな44例についてみると、肉腫を全摘しえたものは17例(38.6%)にすぎず、他はすでに全摘不能の状態であり、試験開腹にとどまった例や尿路変更術、人工肛門造設術の対症的手術や姑息的に放

Table 4. 全摘の有無と転帰※

手 術	死				生 存 率※※	計
	～3ヶ月	～6ヶ月	～1年	～1年6ヶ月		
全 摘	0	1	0	1 (1)	9 (1)	11
全 摘 不 能	12 (3)	5 (2)	0	1	2	20

※：手術治療と転帰の記載の明らかな31例について検討した。

※※：報告時生存例で1年6ヶ月以上の生存という意味ではない。

()：0～15歳までの小児例数

射線療法、抗腫瘍剤の単独ないし併用療法が試みられているにすぎない。よって予後はきわめて悲観的であり、予後の記載のあきらかな33例についてみると入院3ヶ月以内に13例(39.4%)が、6ヶ月以内では19例(57.6%)が死亡している。Table 4は全摘の有無と転帰について手術治療と転帰の記載のあきらかな31例について検討したものであるが、6ヶ月以内に死亡したものが、全摘例1/11例(9.1%)に対し、全摘不能例では17/20例(85.0%)といちじるしく高く、また0～15歳の小児例ではおのおの0/2例(0%)、5/5例(100%)とより一層その傾向が強い。われわれの症例では、前述したように比較的早期に診断できたため肉腫を含めて膀胱・前立腺全摘手術が可能であったことが延命効果をもたらしたものと考える。小児の横紋筋肉腫の治療について伊勢²³⁾は、本肉腫は放射線および制癌剤に感受性が高いが悪性度もきわめて高く、ありきたりの治療では生命を救うことができないと述べ、外科的治療の施行いかににかかわらず腫瘍床もしくは原発病巣に放射線4,500～5,000 rads照射し、これに actinomycin D を2コース併用し、放射線照射終了後 vincristine, cyclophosphamide を1週交互に各10週、20週投与し、さらに cyclophosphamide の経口投与を1年以上続ける方法を施行し、9/16例(56%)に腫瘍の消失がみられ、1年以上生存が4例、2年以上3例と良好な結果を得ている。また Ghavimi ら²⁴⁾は外科的治療の施行いかににかかわらず、4,500～7,000 rads の放射線照射を併用しながら、actinomycin D, vincristine, cyclophosphamide および adriamycin の4剤を2年間反復投与する方法を施行し、24/29例(82.8%)が4ヶ月から42ヶ月生存して

いると報告している。Heyn ら²⁵⁾は外科手術と放射線療法により完全に腫瘍を除去した症例に、術後1年間 actinomycin D, vincristine を投与した28例のうち24例(85.7%)が治療を始めて2年以上生存しているのに対し、手術、放射線療法は完全におこなったが、化学療法をおこなわなかった24例では生存例が5例で全症例の7.8%にすぎなかったと述べて、外科的治療、放射線療法に化学療法を併用することが横紋筋肉腫の治療に欠せないことを強調している。われわれの症例でも後療法として、リニアック照射を併用しながら actinomycin D, adriamycin, cyclophosphamide および vincristine の4者併用の cyclic combination chemotherapy を開始したが、かなり強い副作用が出たため、いずれも最初の予定量を達成できず、また家族の強い希望もあり退院となったため、クールを追加できないまま結局、術後1年2ヶ月で臨床的に局所再発によると思われる悪液質で死亡したが、小児例としては現在のところ本邦最長生存例であった。今後、早期発見による根治手術、また強力な化学療法、放射線療法の出現により生存率の一層の向上がのぞめるものと思われる。

結 語

2歳男子で尿閉を主訴とした膀胱後部肉腫の1例を報告した。腫瘍全摘後、化学療法および放射線療法を施行したが、術後1年2ヶ月で臨床的に局所再発によると考えられる悪液質で死亡した。膀胱後部肉腫の本邦報告例は46例あり、そのうち横紋筋肉腫は10例であった。本肉腫の予後はきわめて悪く、6ヶ月以内に57.6%が死亡しており、また腫瘍全摘例は17例のみで

あった。自験例は術後1年2カ月生存し、小児例としては本邦最長生存例であった。

本論文の要旨は第177回日本泌尿器科学会東北地方会で報告した。稿を終るに臨みご校閲を賜った恩師大堀 勉教授に深謝致します。

文 献

- 1) Young HH and Davis DM : Young's Practice of Urology, Vol. I, p. 558~559, W.B. Saunders, Philadelphia, 1926
- 2) 落合京一郎・神藤秀雄・馬島 潔・足立 保：膀胱後腔に原発した細網肉腫。日泌尿会誌 40 : 111, 1949
- 3) Young HH: Cabot's Modern Urology, Vol. I, p 911, Lea & Febiger, Philadelphia, 1936
- 4) Lazarus JA Primary malignant tumors of the retrovesical region with special reference to malignant tumors of the seminal vesicles ; Report of a case of retrovesical sarcoma. J Urol 55 : 190~205, 1946
- 5) 落合京一郎：前立腺および精嚢腺の外科，日本外科全書，25巻Ⅱ。p. 221~222，金原出版株式会社，1957
- 6) 高安久雄・中野欣也・中村 章：膀胱後部肉腫(Retrovesical sarcoma)。最新医学 17 : 817~823, 1962
- 7) 高安久雄・姉崎 衛：膀胱後部腫瘍(リンパ肉腫症)の1例。癌の臨床 10 : 120~124, 1964
- 8) 酒井 晃・小坂哲志・近沢秀幸：膀胱後部腫瘍(細網肉腫)。臨泌 23 : 217~221, 1969
- 9) 三品輝男・平竹康祐・北村忠久：膀胱後部肉腫(平滑筋肉腫)の1例。泌尿紀要 15 : 854~861, 1969
- 10) 三好信行・河田栄人・野田進士・江藤耕作：膀胱後腫瘍の2例。西日泌尿 36 : 590~598, 1974
- 11) 松岡 啓・野田進士：膀胱後部肉腫症例。西日泌尿 39 : 89~94, 1977
- 12) 森下直由・牧野邦司郎・池田 稔・田中健嗣・進藤和彦・中野信吾・徳永 毅・近藤 厚・関根一郎：膀胱後部腫瘍の4例。西日泌尿 39 : 687~696, 1977
- 13) 柏原 昇・結城清之・西尾正一：膀胱後部肉腫(横紋筋肉腫)の1例。泌尿紀要 24 : 71~76, 1978
- 14) 吉田隆夫・光林 茂・宮川光生・木下勝博：膀胱後部平滑筋肉腫の1例。泌尿紀要 26 : 1031~1037, 1980
- 15) 藤広 茂・説田 修・堀江正宣・坂 義人：膀胱後部腫瘍(未分化移行上皮癌)の1例。泌尿紀要 27 : 195~201, 1981
- 16) 守屋 至・西沢 理・原田 忠：膀胱後腔肉腫の1例。臨泌 35 : 587~590, 1981
- 17) Miller RW : Fifty-two forms of childhood cancer: United States mortality experience, 1960~1966. J Pediatr 75 : 685~689, 1969
- 18) Miller RW and Dalager NA: Fatal rhabdomyosarcoma among children in the United States, 1960~1969. Cancer 34 : 1897~1900, 1974
- 19) Grosfeld JL, Smith JP and Clatworthy HW Jr: Pelvic rhabdomyosarcoma in infants and children. J Urol 107 : 673~675, 1972
- 20) Horn RC Jr and Enterline HT: Rhabdomyosarcoma : a clinicopathological study and classification of 39 cases. Cancer 11 : 181~199, 1958
- 21) 檜沢和夫：軟部組織，腫瘍病理学，菅理晴夫・小林 博，p. 798~803，朝倉書店，1953
- 22) 赤崎兼義：腫瘍，病理学総論，赤崎兼義，第11版，p. 349~352，南山堂，1978
- 23) 伊勢 泰：小児癌。日本臨床 33 : 1856~1861, 1975
- 24) Ghavimi F, Exelby PR, D'Angio GJ, Cham W, Lieberman PH, Tan C, Mike V and Murphy ML: Multidissiplinary treatment of embryonal rhabdomyosarcoma in children. Cancer 35 : 677~686, 1975
- 25) Heyn RM, Holland R, Newton WA Jr, Tefft M, Breslow N and Hartmann JR : The role of combined chemotherapy in the treatment of rhabdomyosarcoma in children. Cancer 34 : 2128~2141, 1974

(1984年2月24日迅速掲載受付)