

## 前立腺 Hemangiopericytoma の1例

国立札幌病院泌尿器科 (医長: 藤枝順一郎)

藤枝順一郎, 大室 博, 大橋 立彦

国立札幌病院病理 (部長: 宮川 明)

宮 川 明

## A CASE OF PROSTATIC HEMANGIOPERICYTOMA

Jun'ichiro Fujieda, Hiroshi Ohmuro and Tatsuhiko Ohhashi

*From the Department of Urology, National Sapporo Hospital*

Akira Miyakawa

*From the Department of Pathology, National Sapporo Hospital*

One case of prostatic hemangiopericytoma is reported. The patient was a 38-year-old man who visited us complaining of difficulty in urination for 6 months duration. Before he came to us, he had undergone open prostatectomy under the suspicion of prostatic abscess at a previous hospital with failure because of very severe adhesion. He was referred to us under the histologic suspicion of prostatic sarcoma. From the histopathological study, he was finally diagnosed as having hemangiopericytoma. However, it was difficult to diagnose whether the lesion was benign or malignant in nature. After the external X-ray irradiation, he has been placed under our observation for these 20 years with roentgenographic followup. No infiltration or metastasis has been detected.

Judging from these findings and our review of the literature, we concluded that the prostatic hemangiopericytoma reported here is benign in nature. To our knowledge, only 6 cases (5 cases from Europe and the US, and 1 case from Japan) have been reported heretofore.

(Acta Urol. Jpn. 36: 355-358, 1990)

**Key words:** Hemangiopericytoma, Prostate, Long-term followup

## 緒 言

前立腺の hemangiopericytoma (以下 HPRC と略す) はきわめて稀な腫瘍であるが, 他の間葉系腫瘍においてもしばしば問題になるように, 組織診断の時点で良性悪性の判定が困難で, 特に臨床上一明らかな腫瘍の浸潤・転移が見られない場合には, 治療方針決定および予後判定の上で臨床家をとまどわせることが多い疾患の1つと思われる。

われわれはこの前立腺 HPRC の1例を経験し, ほぼ20年間追跡観察したので報告する。

## 症 例

患者: 38歳, 男子, 肉体労働者

主訴: 排尿困難

家族歴: 子供5人, ほか特記すべきことなし

既往歴: 5年前, 右鼠径ヘルニアの手術

嗜好: アルコール一焼酎3合/日, 喫煙—新生40本/日

現病歴: 6カ月来の排尿困難にて1969年8月29日某病院泌尿器科受診。前立腺腫瘍の疑いにて同年9月7日 open prostatectomy 試みるも, 被膜肥厚著明にて周囲との癒着も強く, 寒天状の内容排除と前立腺組織の搔爬切除にとどまる。組織標本にて前立腺肉腫が疑われ同年10月7日当科に転科した。

入院時現症: 体格中等度, 筋肉質, 栄養良好, 右鼠径部に手術瘢痕。上部尿路に異常なく, 膀胱部に恥骨上切開手術瘢痕を認める。陰茎, 陰嚢内容略々正常。前立腺は触診上鶏卵大, 硬度硬, 表面不正, 辺縁鮮鋭, 正中溝(+), 圧痛あり。その他の身体所見には異常を認めなかった。

入院時検査成績: 末梢血一般, 血液生化学所見には特に異常を認めず (Ac-P 2.2KA)。尿所見: 黄色, 混濁, 酸性, 比重1.016, 蛋白(-), ウロビリノーゲン(正), 沈渣 RBC 15~20/hpf, WBC 40~50/hpf, 単染色—細菌(-), 結核菌(-) X線学的検査所見: 胸部単純撮影および腎・尿管・膀胱部単純撮

影では異常なく、静脈性腎盂造影で両腎は機能・形態ともほぼ正常。前医の術前尿道造影では前立腺腫大によると思われる後部尿道の延長変移、膀胱内突出像著明。(Fig. 1) 当院での照射前の尿道造影では後部尿

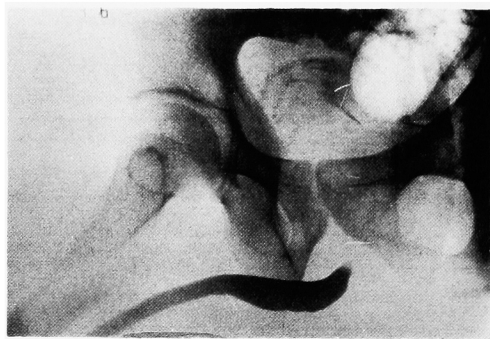


Fig. 1. Retrograde urethrocytogram (before treatment) demonstrates intravesical protrusion of the prostate, and shows compression and elongation of the posterior urethra.

道の延長と一部拡大像を認めるが、膀胱内突出像は著明ではない。

治療経過：前病院で手術した際の組織標本で当初は血管肉腫と診断されたが、同標本を再検討した結果、最終的には前述のごとく HPRC と決定された。しかし、良性、悪性の判定は不能とされた。われわれは悪性の場合を想定し、前の手術が非根治性であることや、明らかな転移がないことを考慮に入れて放射線治療を追加することとし、6-MV Liniac による X 線外照射 75Gy27F/81D を前後対向 2 門で、前立腺部に 9×7 cm の照射野で施行した。54Gy 時に下痢のため、約 1 カ月休止期間をおいた。照射後、特に治療を要する様な傷害は認められなかった。前立腺触診上では照射前鶏卵大であったが、照射後 1 カ月で略々正常大に縮小かつ全体平坦となり、さらに 6 カ月後には、硬度も弾性軟となり、ほぼ正常所見となった。尿道造影所見でもこれに一致して改善がみられた。照射後 1 年の経直腸の前立腺生検で異常細胞を認めなかった。残尿は照射後、終始 5 ml 以下で 10 年後には 0 ml となっている。20 年後の現在も再発・転移の徴無く、前立腺は触診上ほぼ正常、尿道造影上も狭窄像なく (Fig. 2)、患者は自覚的にも排尿円滑、きわめて健康な生活を送っている。

病理組織所見：初回(20年前)の組織標本で腫瘍の密なる部分では細胞は多核巨細胞を混え、多形性を示すと共に特定の構造などは判然としないが、不完全ながら管腔様の構造が認められる。少なくとも、上皮性性

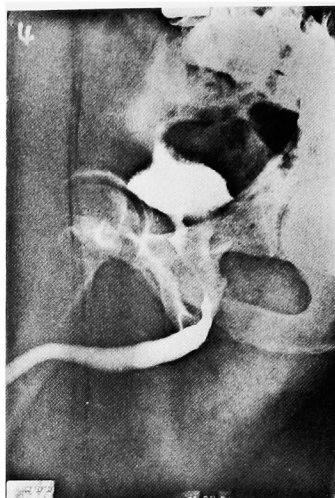


Fig. 2. Urethrocytogram shows quite improved appearance without stricture to date (20 years after the treatment).

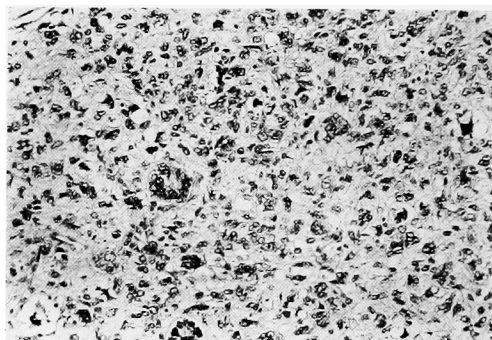


Fig. 3. H. E. The tumor cells form vascular spaces and they are sometimes multinucleated giant cells, but never is atypical mitosis seen.

格に乏しく、筋原性腫瘍、悪性繊維性組織球腫、血管腫瘍等との鑑別が問題となる訳であるが、この時点で HPRC なる病理組織診断が付された。今回、褪色していた 20 年前の標本プレパラートをカバー・ガラスを除去し新たに再染色して検討してみると (Fig. 3)、基本的には前述の所見と全く同様であり、管腔様構造を主としてその外側に腫瘍細胞が配列し、異型性・多形性・巨細胞の出現頻度の高いのに比して、いわゆる“異型分裂像”はきわめて乏しいのが気付かれた。また、これも同様再染色した渡銀染色標本 (Fig. 4) でみると、本腫瘍が血管性腫瘍の構造を呈し、HPRC と再確認された。

## 考 察

HPRC は 1942 年 Stout and Murray<sup>1)</sup> により初

めてその名称で記載された稀な血管腫瘍で、組織培養および超微構造の研究で、毛細血管外周に隣接してみられる痕跡的収縮性細胞である pericyte (周皮細胞) よりの発生とされている。その組織発生に関してはなお、疑念を抱く学者もいるが、WHO (1969) および AFIP (second edition) の軟部腫瘍の分類で血管腫瘍の1つとして記載され、現在では一般にその独立疾患性が認められている。

本腫瘍は悪性経過をたどることが多く、全年齢を通じて生ずるが最も多いのは40~50歳代という。性差はなく (♂ 76 : ♀ 89)、女子は男子より幾分年長発生の傾向。肉眼的には通常、固く灰色もしくは黄褐色、結

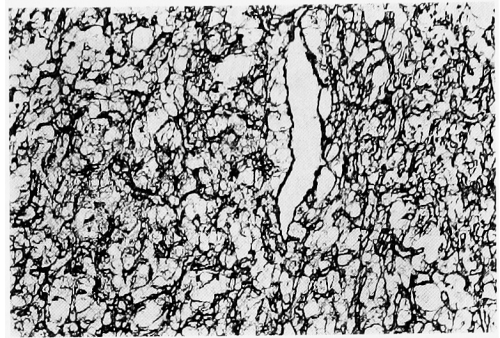


Fig. 4. The silver stain. The reticulin fibrils seem to surround the tumor cells and form vascular network.

Table 1. Hemangiopericytoma of the prostate  
—Review of cases in the literature and ours—

| 症例番号 | 報告者                                  | 年齢        | 主訴                      | 治療                                              | 予後, その他                                |
|------|--------------------------------------|-----------|-------------------------|-------------------------------------------------|----------------------------------------|
| 1    | Stout A.P.<br>(1956)                 | 記載なし      | 記載なし                    | 記載なし                                            | 記載なし                                   |
| 2    | Stout A.P.<br>(1956)                 | 記載なし      | 記載なし                    | 記載なし                                            | 記載なし                                   |
| 3    | Reyes J.W.ら<br>(1977)                | 51才<br>白人 | 1年来の間欠的<br>排尿痛と血尿       | TURP                                            | No followup<br>(未分化癌→HRPC)<br>恥骨破壊像④   |
| 4    | Wünsch P.H.<br>Müller H.A.<br>(1982) | 47才       | "Prostatic<br>symptoms" | Punch biopsyのみ<br>(4回)                          | 3年後健, 再発(-)<br>(4度目にて→<br>Benign HRPC) |
| 5    | Karl T.K.<br>Chen<br>(1987)          | 82才       | 5年来の間欠的<br>尿閉と肉眼的血尿     | TURP                                            | 術後5日死亡<br>右肺癌合併 (Oat cell ca)          |
| 1    | 石黒, 山越, 置塩<br>玉井, 名出, 笠原<br>(1984)   | 67才       | 2年来の排尿困難                | TURP                                            | 術後7ヶ月健, 再発(-)<br>(Pr Ca+HRPC)          |
| 2    | 自験例<br>(1988)                        | 38才       | 6ヶ月来の排尿困難               | Open prostatectomy<br>+ External<br>irradiation | 治療後20年健, 再発(-)<br>(HRPC→Benign HRPC)   |

節性で境界鮮明、時に石灰化が見られるが本症独特のものではない。血管が豊富で、繊維性組織による粗な小柱形成が見られるとされるが、結局、一般には血管様相以外に特別な肉眼的特徴を示さない。壊死・出血を生ずることがあり、その場合は赤色、脆弱となる。腫瘍が被膜に覆われているように見える場合にも通常組織学的には腫瘍浸潤を認めることが多い。大きさは通常小さく、最大のものは骨盤腹膜、子宮、最小のものは髄膜、後眼窩に報告されている<sup>2)</sup>。pericyte は毛細血管や細静脈壁に存在する細胞であるから、本腫瘍は身体の何処にでも発生しうる訳であるが、実際には稀な腫瘍に属する。Hajdu<sup>3)</sup> は自験例を含めた 271 例の検討で、四肢特に下肢、後腹膜、駆幹に比較的多く見られると報告している。中でも前立腺の本症の報告例はきわめて少なく、現在の所、調べた限りでは、欧米 5 例、本邦、自験例を含め 2 例の計 7 例に過

ぎない<sup>2,4-7)</sup>。Stout による前立腺 HPRC の最初の報告の 1, 2 例目は外部組織 98 例、内部組織 99 例、計 197 例の中の 2 例 (1.0%) である。なお、HRPC の発生率に関しては欧米と本邦では相異がみられ、鈴木ら<sup>8)</sup>によると皮膚、皮下、筋などでの発生率は本邦、欧米ほとんど同率であるが、胃の発生例は本邦に多く、反対に欧米では比較的多いとされる子宮や十二指腸、小腸、中枢神経系などの発生報告は本邦に未だ 1 例もないという。診断としては組織学的検査が決め手になり、本症を最初に記載した Stout の簡潔な criteria は現在でも参考にされている (normal appearing endothelial cells, separated by a fibrous sheath from proliferating tumor cells)。Stout の定義した本症の典型的組織以外に多少の変形型として、粘液変性、血管周囲纖維症 (基底膜肥厚とか細胞間レチクリンや比較的大きい血管を伴う)、渦巻型が

報告されており<sup>2)</sup>、自験例では前述のごとく、粘液性変化がみられた。組織所見による良性悪性の鑑別の可否に関しては議論のあるところで<sup>3)</sup>、細胞充実性 (cellularity)、分裂細胞数、壊死・出血巣を指標に鑑別可能とする意見がある一方で、これら細胞の未分化像は良性腫瘍の場合にもみられ組織学的に良性悪性を判定するのは困難とする見解もある。また、Hajdu<sup>3)</sup>は組織所見も重要であるが腫瘍の大きさ、部位、手術時の切除程度も考慮に入れるべきことをあわせて述べ、事実、切除困難な部位の腫瘍に再発が多いことを指摘している。しかし、Binder ら<sup>9)</sup>は腫瘍の大きさや増殖の速度、期間と生物学的態度は関係無いと述べるなどこの点でも意見は一致していないようである。われわれの例では腫瘍細胞は著明な異型性を示し、悪性腫瘍を考えるのに充分の組織像であったが、これに見合う“異型分裂像”がほとんど認められず、これと臨床的に良性経過をたどったことを考えあわせると、分裂像の有無（もしくは多寡）が今後本腫瘍（少なくとも前立腺 HPRC）の良性悪性を示す組織学上の重要な指標になることが示唆されたものと考えている。転移部位は血行性に骨、肺に多く<sup>9)</sup>、易転移性に関しては外部組織では下肢特に大腿の腫瘍、内部組織では後腹膜、縦隔の腫瘍が比較的転移し易いとの報告がある<sup>3)</sup>。McMaster ら<sup>10)</sup>は60症例の検討で、転移は組織学的に悪性とみなされる例の64.5%にみられ、うち4例においては5、7、10、16年後に転移が現れており、長期観察が必要な理由としている。

治療については良性悪性の鑑別が困難な以上、正常組織を含めた腫瘍の完全切除という点で一致しているのは当然と言えよう。部分切除では悪性の場合、ほとんど再発を来し全体の再発率は50%と言われる<sup>3)</sup>。照射療法に関して、Mira ら<sup>11)</sup>、Binder ら<sup>9)</sup>は姑息的照射の有用可能性を示唆しているが、他方では本症はその性質上放射線抵抗性で成功例はきわめて少ないとする意見も多い。化学療法に関しては放射線療法同様評価は確定されておらず、化学療法単独あるいは外科治療や照射療法との組み合わせで客観的改善が見られたという報告はわずかしかない<sup>9,10)</sup>。予後に関しては、McMaster ら<sup>10)</sup>の長期観察報告（11カ月～22年）によると60例中死亡36（60%）で、死亡率は組織学的に良性、境界域（良悪の）、悪性の順に高率となつてゆくが悪性と判断された症例で48カ月、51カ月、22年後も腫瘍なく健在の例があることは興味深いところである。

## 結 語

われわれは良性悪性を判定しかねた前立腺 HPRC に放射線療法を施行し20年経過を観察した結果、その間何らの浸潤・転移の徴候を示さなかったことや、これまでの報告文献の内容とも考えあわせ、本例は良性の前立腺 HPRC との結論を得たので報告した。

本論文の要旨は第43回国立病院療養所総合医学会泌尿器科分科会（松山）にて発表した

## 文 献

- 1) Soout AP and Murray MR: Hemangiopericytoma—a vascular tumor featuring Zimmermanns pericytes. *Ann Surg* 116: 26-33, 1942
- 2) Reyes JW, Shinozuka H, Gary P and Putton PB: A Light and electron microscopic study of a hemangiopericytoma of the prostate with local extension. *Cancer* 40: 1122-1126, 1977
- 3) Hajdu SL: Pathology of Soft Tissue Tumors. Lea & Febiger, 1979
- 4) Stout AP: Tumors featuring pericytes—glomus tumor and hemangiopericytoma. *Lab Invest* 5: 217-233, 1956
- 5) Wünsch PH and Müller HA: Hemangiopericytoma of the prostate: a light microscopic study of an unusual tumor. *Pathol Res Pract* 173: 334-338, 1982
- 6) Chen KTK: Hemangiopericytoma of the prostate. *J Surg Oncol* 35: 42-43, 1987
- 7) 石黒幸一, 山越 剛, 置塩則彦, 玉井秀亀, 名出頼男, 笠原政男: 前立腺の Hemangiopericytoma. *泌尿紀要* 30: 931-934, 1984
- 8) 鈴木 博, 佐藤孝臣, 小野寺時夫, 葛西森夫: 血管周皮細胞腫 (Hemangiopericytoma)—自験例と本邦報告86例の文献的考察一. *癌の臨床* 22: 890-898, 1976
- 9) Binder SC, Wolfe HJ and Deterling RA Jr.: Intraabdominal hemangiopericytoma—report of four cases and review of the literature. *Arch Surg* 107: 536-543, 1973
- 10) McMaster MJ, Soule EH and Ivins JC: Hemangiopericytoma—a clinicopathologic study and long-term followup of 60 patients. *Cancer* 36: 2232-2244, 1975
- 11) Mira JG, Chu FCH and Fortner JG: The role of radiation therapy in the management of malignant hemangiopericytoma. *Cancer* 39: 1254-1259, 1977

(Received on June 5, 1989)  
(Accepted on September 4, 1989)