

膀胱腫瘍に合併した後腹膜腔 Castleman's disease の1例 本邦報告例59例の検討

金沢大学医学部泌尿器科学教室（主任：久住治男教授）

森下 裕志，小林 忠博，國見 一人，天野 俊康
越田 潔，打林 忠雄，久住 治男

山口大学医学部泌尿器科学教室（主任：内藤克輔教授）

内 藤 克 輔

A CASE OF RETROPERITONEAL CASTLEMAN'S DISEASE ASSOCIATED WITH BLADDER TUMOR AND A REVIEW OF 59 CASES IN JAPAN

Hiroshi Morishita, Tadahiro Kobayashi, Kazuto Kunimi,
Toshiyasu Amano, Kiyoshi Koshida, Tadao Uchibayashi
and Haruo Hisazumi

From the Department of Urology, School of Medicine, Kanazawa University

Katsusuke Naito

From the Department of Urology, School of Medicine, Yamaguchi University

We present a case of retroperitoneal Castleman's disease associated with bladder tumor. The patient was a 62-year-old man, who underwent partial cystectomy under a diagnosis of bladder tumor in 1989. Subsequently, recurrent bladder tumor was detected and he consulted the outpatient clinic at our University Hospital in November, 1990, at which time computerized tomography (CT) revealed a retroperitoneal tumor. From February, 1991 four courses of combined chemotherapy (methotrexate, vinblastine, pirarubicin, cisplatin) were administered for the tumor. The tumor reduction rate after the chemotherapy was 60% on CT, and retroperitoneal lymph node dissection and left nephroureterectomy were performed in July, 1991. Histological examination revealed Castleman's disease, hyaline-vascular type. Fifty-nine reported cases of retroperitoneal Castleman's disease in Japan are reviewed.

(Acta Urol. Jpn. 38:1041-1044, 1992)

Key words: Castleman's disease, Retroperitoneal tumor, Bladder tumor

緒 言

Castleman's disease は後腹膜腔に発生することが比較的稀な原因不明の良性的リンパ増殖性疾患である。今回われわれは、術前に転移性膀胱腫瘍と診断された後腹膜腔発生 of Castleman's disease の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：62歳，男性

主訴：再発性膀胱腫瘍の精査・加療

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：1986年，左上眼瞼腫瘍（pseudolymphoma suspect）にて腫瘍摘出術，心筋梗塞にてACバイパス術，糖尿病。1987年，左上眼瞼腫瘍再発にて再手術および放射線療法。

現病歴：1989年11月下旬に肉眼的血尿を認め某院泌尿器科を受診したところ，膀胱腫瘍を指摘された。1989年12月21日，同院にて膀胱部分切除術および左尿管膀胱新吻合術を受けた。1990年11月6日，同院にて膀胱腫瘍の再発を指摘されたが，精査・加療を希望し11月9日当科を初診した。12月6日，selected-site mu-

cosal biopsy (以下 SSMB と略す) を施行したところ、CIS と診断され1991年1月17日、当科へ入院した。

入院時現症：身長 172 cm, 体重 65.2 kg. 血圧 98/68 mmHg. 前胸部正中, 下腹部正中および左下腿部に手術瘢痕を認める以外, 身体所見に特記すべき異常は認められなかった。

入院時検査成績：血液一般に異常なし。血液生化学では、FBS が 232 mg/dl と高値である以外異常は認めず 検尿は RBC 30~35/hpf, WBC 8~10/hpf, 蛋白 (±), 糖 (3+), 尿細胞診は class V であった。その他 CEA, CA19-9, Ferritin は正常範囲内であった。

画像診断：KUB にて左腎部に 2×4 mm の結石陰影が認められた。DIP では左上部尿管の外側への圧排偏位が認められた。CT では左腎動静脈および尿管を取り巻くようにして、左腎門部を中心に最大径 68×91 mm の充実性腫瘍が認められた (Fig. 1)。なお胸部X線撮影、骨シンチでは異常は認められなかった。以上の所見より膀胱腫瘍の後腹膜リンパ節転移と診断し、1991年2月25日より多剤併用化学療法 (methotrexate 30 mg/m², vinblastine 3 mg/m², pirarubicin 30 mg/m², cisplatin 70 mg/m²) を4クール施行した。多剤併用化学療法4クール施行後のDIPでは左上部尿管の外側への圧排偏位の改善が認められ、また同時期に施行したCTでは左腎門部腫瘍は最大径 38×65 mm と、縮小率は約60%であった。尿細胞診は class I~II と陰性化し、SSMB においても CIS は認められなかった。

手術所見：1991年8月21日、後腹膜リンパ節郭清術および左腎尿管摘除術を施行した。経腹膜的に後腹膜腔に達したが、腫瘍は大動脈前面にて左腎門部を中心に大動脈分岐部付近まで存在していた。大動脈との癒着

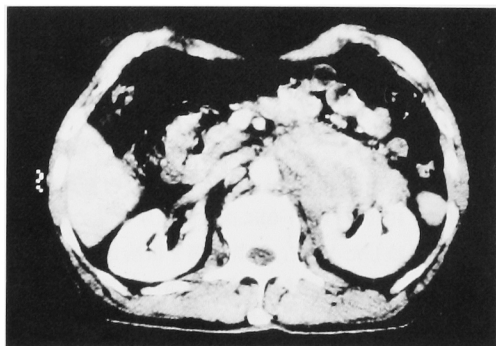


Fig. 1. Abdominal CT showing left retroperitoneal tumor, 68×91 mm in size.



Fig. 2. Macroscopic feature of the pararenal mass, left kidney and ureter on a cross section.

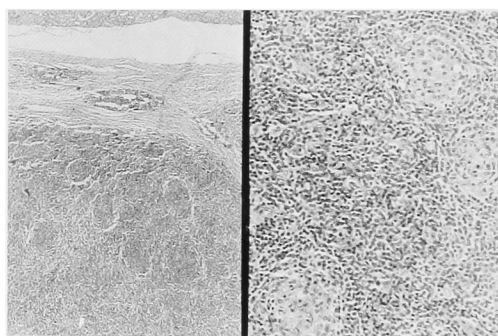


Fig. 3. Microscopic finding of the pararenal mass.

は認められず剥離は容易であったが、腎門部において左腎動静脈および尿管を巻き込み、腎との癒着がきわめて強固であったため、左腎尿管摘除術を併施した。術中迅速病理組織診断では、lymphoma の疑いがあるものの確定診断には至らなかった。

摘出標本：腎門部を中心に上下に延びる 8×3×3 cm 大の腫瘍が認められ、断面は赤褐色で出血壊死は認められなかった (Fig. 2)。病理組織学的には腫瘍は小型の成熟リンパ球の増生が主体をなし、その中にリンパ濾胞様構造が多数認められた。リンパ濾胞様構造の中には硝子化した血管が認められ、またそれぞれのリンパ濾胞様構造の間の部位にも硝子化血管が多数認

められた。異型細胞はなく、腎や尿管への浸潤性増生も認められなかった。なお移行上皮癌の成分はまったく認められず、線維性瘢痕組織等も認められなかった (Fig. 3)。これらの所見より Castleman's disease, hyaline-vascular type と診断した。

術後経過: 尿細胞診が術後再び class V となり, SSMB を施行したところ CIS の再発が認められたため, MMC 膀胱内注入療法にて現在経過観察中である。術後2カ月の CT では後腹膜腔に Castleman's disease の再発は認められていない。

考 察

Castleman's disease は1954年, Castleman ら¹⁾ によりはじめて報告された。1956年には同じく Castleman ら²⁾ により, 胸腺腫に類似した縦隔リンパ節の過形成として13例が報告されているが, 胸腔内, 特に縦隔に好発する原因不明の良性のリンパ増殖性疾患である。1969年, Flendrig³⁾ は本症を type 1 と type 2, さらに両型の特徴を合わせ持つ intermediate group に分類している。1972年, Keller ら⁴⁾ は本症81例を集計し, hyaline-vascular type (以下 HV 型と略す) と plasma cell type (以下 PC 型と略す) の2つの組織型に分類している。HV 型は Flendrig の分類の type 2 に相当し, 81例中74例と91%を占め臨床的には腫瘍による圧迫症状が出現しないかぎり, はほとんどが無症状に経過する。組織学的には, 小型の胚中心を持つリンパ濾胞およびリンパ濾胞中心部の血管壁の硝子化さらに濾胞間毛細血管の増生を特徴とする。一方 PC 型は Flendrig の分類の type 1 に相当し, 81例中7例と9%を占めるに過ぎず, 臨床的にはその約半数に発熱, 発汗, 全身倦怠感などの臨床症状および貧血, 赤沈亢進, 白血球増多, 高ガンマグロブリン血症, 低アルブミン血症などの異常所見を呈する。組織学的には血管増生や硝子化が見られない正常大から大型の胚中心を持つリンパ濾胞およびリンパ濾胞間における成熟形質細胞のシート状存在を特徴とする。後腹膜腔における Castleman's disease の発生は比較的稀で, 本邦では1964年に田中ら⁵⁾ が1例目を報告している。村上ら⁶⁾ は1986年4月までの本邦報告205例を集計し, このうち後腹膜腔発生例は全体の10.2%であったと述べている。1991年に野田ら⁷⁾ が1990年までの本邦における後腹膜腔発生例45例を集計しているが, われわれはさらに他の報告例を含め, 現在までに自験例を加えた14例⁸⁻²⁰⁾ を集計したので本邦報告例59例につき統計的観察を行った。年齢・性分布は11歳から77歳, 平均39.3歳であり, 男女比は1

Table 1. The distribution of age and sex in retroperitoneal Castleman's disease.

年齢(歳)	男性	女性	計
10~19	3	3	6
20~29	2	7	9
30~39	7	6	13
40~49	9	7	16
50~59	2	3	5
60~69	4	2	6
70~79	1	0	1
	28	28	56
不 明		3	59

11歳~77歳, 平均年齢39.3歳

1 と同数であった (Table 1)。腫瘍の大きさは5~10 cm のものが過半数を占め (35/60; 58.3%), 発生部位としては腎周囲が最も多かった (21/60; 35%)。なお1例に2カ所同時発生が認められた。術前に本症と診断された症例は生検にて確定診断がえられた1例を除けば皆無であった。腎周囲の発生例が多いことより副腎腫瘍と術前診断された症例が多かった。治療としては外科的摘除が施行された症例が大多数だが, 放射線療法施行例が1例認められた。化学療法施行例は, 自験例以外には認められなかった。組織学的には HV 型が79.6%を占めており, 予後については不明の報告例を除けばすべて良好であった。尿路悪性腫瘍を含め, 悪性腫瘍との合併例は自験例以外には認められなかった。本症には特異的検査法がなく, かつ画像診断においても特徴的所見が乏しいため術前診断は困難であり, 術後病理組織学的に確定診断がなされる症例が大多数である。本症の治療は腫瘍の外科的摘出であり, これによって術前の臨床症状の消失および血液学的異常の正常化が認められている。症例によっては悪性腫瘍の疑いが濃厚で, リンパ節郭清や周囲組織合併切除が行われる場合もあるが, 本来良性疾患であり術前の生検または術中迅速病理組織診断にて診断がつけば, 腫瘍摘出のみで十分であると思われる。自験例は, 結果的には転移性膀胱腫瘍として化学療法を長期間施行したことになるが, 膀胱の CIS が認められており治療法としては妥当であったと思われる。化学療法については, 多発性で進行が早くしばしば死の経過をたどる, いわゆる multicentric Castleman's disease における奏効例の報告²¹⁾ があり, これらの症例で試みるべきものと思われる。本症の成因としては, 炎症説, 過誤腫説, 腫瘍説があるが, いずれも決定的な証拠はなく成因は不明である。

結 語

膀胱腫瘍に合併した後腹膜腔 Castleman's disease の1例を報告し、若干の文献的考察を加えた。

なお、本論文の要旨は第354回日本泌尿器科学会北陸地方会において発表した。

文 献

- 1) Castleman B and Towne VW: Case records of the Massachusetts General Hospital, case 40011. *N Engl J Med* **250**: 26-30, 1954
- 2) Castleman B, Iverson L and Menendez VP: Localized mediastinal lymph-node hyperplasia resembling thymoma. *Cancer* **9**: 822-830, 1956
- 3) Flendrig JA: Het benigne reuzenlymfoom (the benign giant lymphoma). Proefschrift, Katholieke Universiteit te Nijmegen, N.V. Drukkerij "Helmond", Helmond, the Netherlands, 1969
- 4) Keller AR, Hochholzer L and Castleman B: Hyaline-vascular and plasma-cell types of giant lymph node hyperplasia of the mediastinum and other locations. *Cancer* **29**: 670-683, 1972
- 5) 田中 昇, 幕内精一, 三国和雄, ほか: 後腹膜の巨大な腫瘍様リンパ組織増生 (Castleman 型リンパ腫) の1例. *医のあゆみ* **50**: 547-549, 1964
- 6) 村上義昭, 布袋裕士, 津村裕昭, ほか: 後腹膜に発生した Castleman リンパ腫の1例—本邦報告205例の検討. *臨外* **42**: 677-683, 1987
- 7) 野田雅俊, 小野憲昭, 武田克治, ほか: 後腹膜に発生した Castleman's lymphoma の1例: 本邦報告例45例の検討. *香川中病医誌* **10**: 51-55, 1991
- 8) 小林 一, 武蔵 学, 前田史郎, ほか: 後腹膜に発生した Castleman リンパ腫 Plasma cell type の1例. *臨血* **24**: 60-61, 1983
- 9) 長坂徹郎, 中島伸夫, 五島岸子, ほか: 後腹膜に発生した Castleman 腫瘍類似病変の1例. *病院*

病理 **4**: 85, 1986

- 10) Yasuda J, Sawada S, Tomioka M, et al.: Castleman's disease associated with pregnancy: A case report. *Asia-Oceania J Obstet Gynaecol* **13**: 451-454, 1987
- 11) 谷川克己, 松下一男, 大越正秋: 後腹膜 Castleman's disease の1例. *日泌尿会誌* **79**: 2065, 1988
- 12) 中山承代, 別所文雄, 小島美由紀, ほか: 鉄欠乏性貧血を伴った後腹膜原発の Castleman リンパ腫の1例. *日小血会誌* **3**: 372-375, 1989
- 13) 宇野裕巳, 永井 司, 玉木正義, ほか: 後腹膜にみられた Castleman lymphoma の1例. *岐阜大医紀* **37**: 1009, 1989
- 14) 郷司和男, 水野緑仁, 後藤章暢, ほか: 後腹膜腫瘍の10例. *西日泌尿* **52**: 1233-1237, 1990
- 15) 森谷 晋, 森下鉄夫, 森木隆典, ほか: 腹部 Castleman リンパ腫 (hyaline-vascular type) の1例. *静岡赤十字病院研究報* **10**: 53-56, 1990
- 16) 大江久國, 伊藤重彦, 赤嶺晋治, ほか: 後腹膜に発生した Castleman リンパ腫の1例. *外科診療* **4**: 617-620, 1991
- 17) 飯尾 里, 郷良秀典, 中野秀磨, ほか: 後腹膜 Castleman's lymphoma の1例. *日臨外医会誌* **52**: 1387-1390, 1991
- 18) 森 義人, 増田富士男, 鳥居伸一郎, ほか: 骨盤内に発生した Castleman リンパ腫の1例. *日泌尿会誌* **82**: 1193, 1991
- 19) 田中利幸, 石川清仁, 白木良一, ほか: 後腹膜腔に発生した Castleman 腫瘍の1例. *日泌尿会誌* **82**: 1851, 1991
- 20) 岡田茂樹, 平井 景, 上田陽彦, ほか: 後腹膜腔に発生した Castleman 病. *臨泌* **45**: 1061-1064, 1991
- 21) Weisenburger DD, Nathwani BN, Winberg CD, et al.: Multicentric angiofollicular lymph node hyperplasia: A clinicopathologic study of 16 cases. *Hum Pathol* **16**: 162-172, 1985

(Received on February 12, 1992)

(Accepted on March 23, 1992)