

腎血管筋脂肪腫の2例

和歌山赤十字病院泌尿器科（部長：桐山畜夫）

滝	洋	二
日	裏	勝
猪	飼	恭
林		正
桐	山	畜
		夫

TWO CASES OF RENAL ANGIOMYOLIPOMA

Yoji TAKI, Masaru HIURA,
Kyoko IKAI, Tadashi HAYASHI
and Tadao KIRIYAMA

*From the Department of Urology, Wakayama Red Cross Hospital
(Chief: Dr. T. Kiriya)*

Two cases of renal angiomyolipoma without tuberous sclerosis are reported. The first case was of a 35-year-old man with complaints of right upper abdominal and right flank pain. Preoperative diagnosis was right renal angiomyolipoma. Thoracoabdominal radical nephrectomy and lymphadenectomy were performed. The pathological diagnosis was renal angiomyolipoma with lymphnode involvement. The second case was of a 46-year-old woman whose left renal mass had been accidentally found by ultrasound study. Preoperative diagnosis was left renal angiomyolipoma. This tumor was enucleated from the left kidney through flank incision.

Key words: Angiomyolipoma, Lymphnode involvement, Enucleation

緒 言

腎血管筋脂肪腫（以下腎AMLと略す）は血管、平滑筋および脂肪組織より構成される腎良性腫瘍で、本腫瘍の頻度は腎腫瘍8,501例中27例（0.3%）¹⁾で、本邦においても高士ら²⁾が194例を集計している。このように比較的稀ではあるが、すでに症例報告がなされないほどに一般的な疾患となっている。

われわれは最近2例の腎AMLを経験した。1例において切除した腎門部リンパ節にAML像を認め、他の1例においては腫瘍核出術を施行した。若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1

患者 H. H. 35歳，男子，会社員

初診：1985年10月9日

主訴：右上腹部～側腹部痛

既往歴：10歳時虫垂切除。知能障害，てんかん発作の既往なし。

家族歴：父が肺癌にて死亡

現病歴：1985年10月7日右上腹部～側腹部痛をきたし近医受診。投薬を受けた。疼痛が続くため、翌日も同医を受診した。超音波検査にて異常を指摘され当院を紹介された。経過中肉眼的血尿を認めていない。

入院時現症：体格は中等，栄養良好。血圧126/74 mmHg，脈拍74/分整，体温36.1°C。顔面に皮脂腺腫なし。腹部では右腎下半をよく触知するも腫瘤は不明。肝，脾，左腎は触れず。表在リンパ節の腫脹なく，下肢浮腫を認めない。

他の異常所見を認めない。

入院時検査成績：Table 1 のごとく LDH の（正常範囲 50～400）の軽度上昇がみられるほか、異常値はなかった。

超音波検査：肝に接するように右腎上極に、比較的均一な echogenic な巨大腫瘍を認めた（Fig. 1）。

レントゲン検査：IVP では中腎杯および上腎杯の圧排を認め、上極の SOL を疑わしめた。大動脈造影、選択的右腎動脈造影において、右腎上極に屈曲蛇行し動脈瘤様拡張を伴った新生血管を認めた。ネフログラムは正常腎実質部より淡く、動静脈瘻は認めなかった（Fig. 2）。下大静脈造影では異常所見を認めなかった。CT では右腎上極に肝に接するように巨大な腫瘍があり、その内部構成は脂肪組織と思われる -60 HU の吸収値を示す部分が隔壁により房状に分けられていた。一部に血腫の存在が認められた（Fig.

3）。

臨床経過：以上の所見より右腎に発生した AML と診断した。腫瘍内出血を伴い再出血の危険が高いと思われ、腫瘍の摘出が必要と判断した。腫瘍が巨大なため、腎保存は不可能と考え、1985年10月23日に胸腹式根治的腎摘除術を施行した。右腎は周囲組織との癒着もなく容易に摘出できた。術時腎門部リンパ節の腫大は認めなかったが、この部のリンパ節を郭清した。術後経過は良好で11月16日に退院し、現在外来に通院している。再発を疑わせる所見はない。

病理所見 重量 750 g、右腎中央～上極にかけて 11×11×6 cm の腫瘍を認める。正常腎との境界は明瞭で、断面は黄色の充実性腫瘍であった。腫瘍内に血腫

Table 1. Laboratory data of case 1

BSR: 1":	28 mm	Urine culture:	Negative
2":	72 mm	Blood chemistry value	
CBC: RBC	474×10 ⁴ /mm ³	Na	144 mEq/l
WBC	8300 /mm ³	K	4.5 mEq/l
Hb	15.2 g/dl	Cl	99 mEq/l
Ht	43.5 %	BUN	8 mg/dl
PLT	40.1×10 ⁴ /mm ³	Uric acid	5.9 mg/dl
Bleeding time	2'	Creatinin	1.3 mg/dl
Urinalysis		Total protein	7.7 g/dl
PH	7.0	Al-P	7.2 KAU
protein	(-)	GOT	17 KU
sugar	(-)	GPT	14 KU
occult blood	(-)	LDH	421 WU
RBC	0-1 /HPF		
WBC	0-1 /HPF		
Epithel	0-1 /HPF		

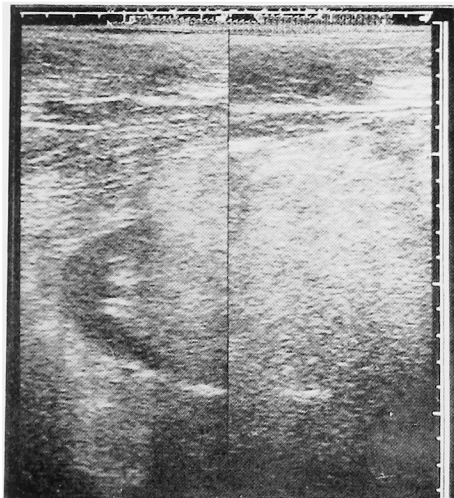


Fig. 1. Case 1: Ultrasonogram shows echogenic right renal mass

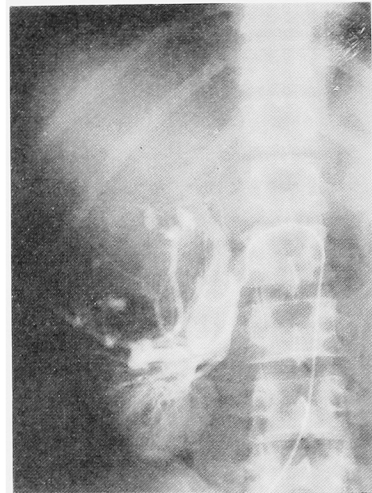


Fig. 2. Case 1: Selective renal arteriogram shows abnormal tortuous vessels with aneurysmal dilatation

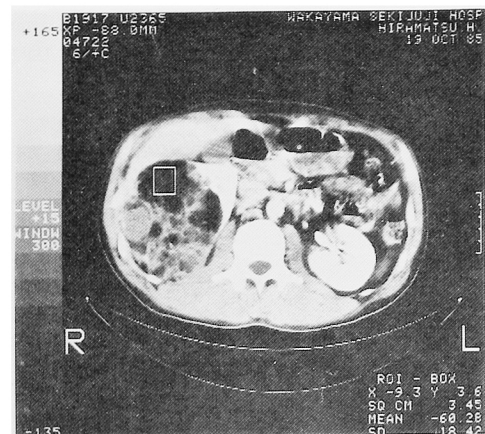


Fig. 3. Case 3: CT-scan shows that renal mass has attenuation values of -60HU

を認めた。組織学的には脂肪、血管、筋よりなる腫瘍で、平滑筋細胞の多形性、核分裂像などは認めなかった (Fig. 4)。切除したリンパ節にも同様の AML 像を認めた (Fig. 5)。

症例 2

患者：W. H. 46歳，女子，主婦

初診：1985年7月22日

主訴：左腎の精査希望

既往歴：28歳時虫垂切除，知能障害，てんかん発作の既往なし

家族歴：兄が糖尿病にてインシュリン使用中

現病歴：約1年前に発熱があり，近医で腎盂腎炎と診断された。この時超音波検査で左腎上部に2~3 cm 大の腫瘤を指摘されていたが症状がないため放置していた。今回同医により再び左腎腫瘤を超音波検査で指摘され確定診断を受けるため，当院へ紹介された。経過中肉眼的血尿を認めていない。

入院時現症：体格は中等，栄養良好，血圧 110/70 mmHg，脈拍66/分整，体温 36.3°C。顔面に皮脂腺腫なし，腹部では右腎下極を触知するも肝，脾，左腎は触れず。表在リンパ節の腫脹なく，下肢の浮腫を認め

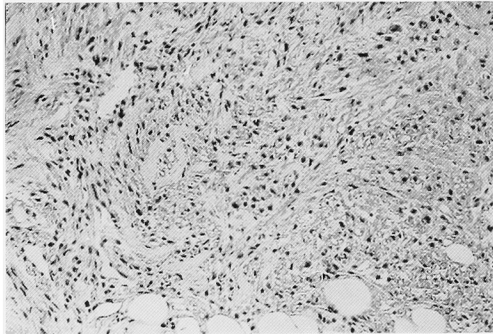


Fig. 4. Case 1: Photomicrogram shows smooth muscle, blood vessels and adipose tissue

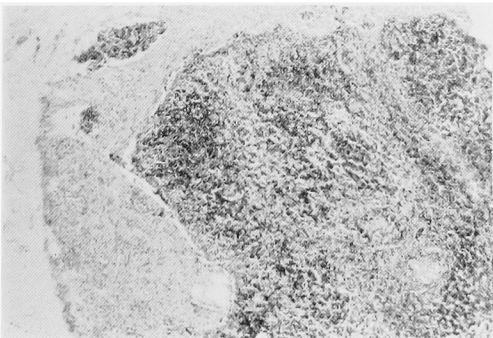


Fig. 5. Case 1: Photomicrogram of lymphnode shows angiomyolipoma and lymphocytes

Table 2. Laboratory data of case 2

BSR: 1'	3 mm	Urine culture: E. coli	8×10 ⁶ /ml
2'	10 mm	Blood chemistry value	
CBC: RBC	437×10 ⁶ /mm ³	Na	142 mEq/l
WBC	3200/mm ³	K	3.9 mEq/l
Hb	14.5 g/dl	Cl	100 mEq/l
Ht	40.5 %	BUN	14 mg/dl
PLT	14.1×10 ⁴ /mm ³	Uric acid	5.4 mg/dl
Bleeding time	2'30"	Creatinin	1.3 mg/dl
Urinalysis		Total protein	7.7 g/dl
PH	6.0	Al-P	3.7 KAU
protein	(±)	GOT	14 KU
sugar	(-)	GPT	18 KU
occult blood	(+)	LDH	248 WU
RBC	3-4/HPF		
WBC	4-5/HPF		
Epithel	1-2/HPF		

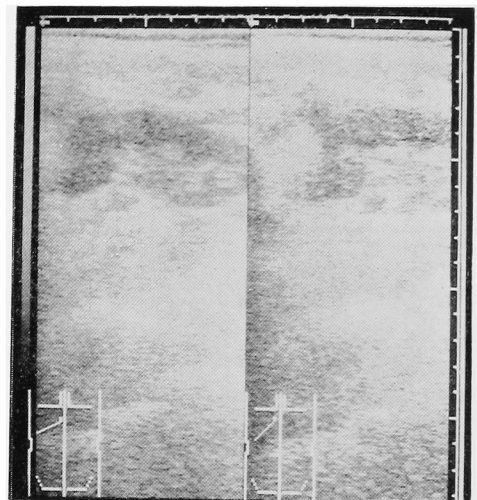


Fig. 6. Case 2: Ultrasonogram shows echogenic left renal mass

ず。他の異常所見を認めない。

入院時検査成績：Table 2 のごとく顕微鏡的血尿および細菌尿を認めた。

超音波検査：左腎上極に 3.3×3.2 cm の腫瘤を認める。腫瘤壁は厚く，内部は echogenic である (Fig. 6)。

レントゲン検査：IVP では腎盂腎杯の変形はない。左腎長軸の変位および上極実質がやや厚いかと思われるも，はっきりした SOL は指摘できない。

選択的左腎動脈造影において，左腎上極に屈曲蛇行し小さな動脈瘤様拡張を伴った新生血管を認めた。動静脈瘻はなく，ネフログラムは正常腎実質部より淡かった (Fig. 7)。CT では左腎上極内側に小腫瘍を認める。腫瘍内部は脂肪の吸収値をもつ部分を含んでいる (Fig. 8)。

臨床経過：以上の所見より左腎に発生した AML と診断した。腎保存手術可能と判断し 1985 年 8 月 23

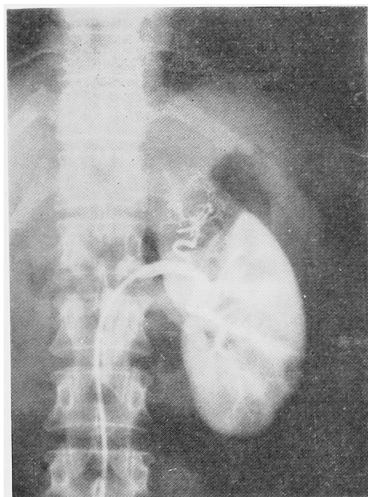


Fig. 7. Case 2 Selective renal arteriogram shows tumor with neovascularity and aneurysmal dilatation at the upper pole of left kidney

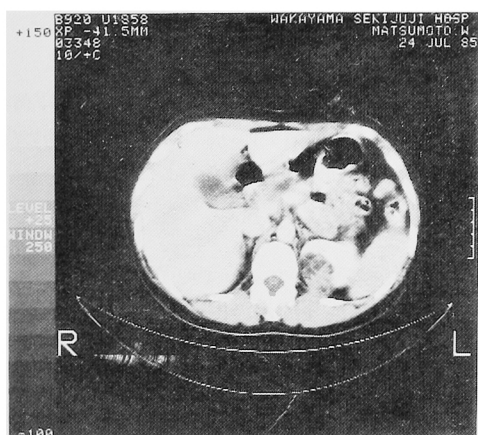


Fig. 8. Case 2: CT-scan shows that renal mass has attenuation values of -60 HU

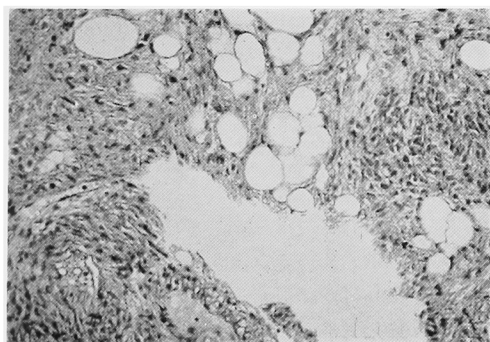


Fig. 9. Case 2: Photomicrogram shows smooth muscle, blood vessels and adipose tissue

日、左腎腫瘍核出術を施行した。12肋骨先端を切除し腰部斜切開にて後腹膜腔に達した。Gerota の筋膜を切開し左腎を周囲より剝離した。腫瘍部では周囲結合組織および副腎とやや癒着を認めるも比較的容易に剝離できた。腎動脈をブルドック柑子にてクランプし、腫瘍を核出した。正常腎組織と腫瘍部の境界は明瞭で容易に層を分離できた。正常腎露出面の血管を 4-O vicryl にて止血、2-O vicryl にて腎実質を合わせるようにした。腎阻血時間は19分であった。腎冷却は行なわなかった。術後経過は良好で、9月15日に退院し、現在外来通院中である。再発を疑わせる所見はない。なお術後 IVP では左腎機能は良好であった。

病理所見：重量 40 g $3 \times 3 \times 2$ cm の黄褐色の充実性腫瘍で組織学的には脂肪、血管、筋よりなる AML であった。細胞の多形性・核分裂像などを認めなかった (Fig. 9)。

考 察

腎 AML の臨床像、診断、病理に関する論文は多い。本稿ではわれわれの経験した2症例に関係のある、(1) lymphnode involvement を含むいわゆる“悪性”を示唆する所見および (2) enucleation を含む治療法の選択について考察を加えたい。

(1) Lymphnode involvement を含むいわゆる“悪性”を示唆する所見について

AML が良性腫瘍であるとする最大の根拠は遠隔転移およびそれによる死亡が1例も報告されていないことである。しかし AML には“悪性”と思わせる所見を伴うことも多い。

- a) 多発性、両側性の発生がある。
- b) 腎実質が破壊されることがある。
- c) 腎動脈以外からの動脈供給³⁾。
- d) 他臓器浸潤を含む腎外発育

十二指腸⁴⁾、結腸⁵⁾などの周囲臓器への浸潤や腎被膜を破った発育形式⁵⁾が報告されている。

- e) 静脈侵襲

Price⁶⁾ は静脈侵襲そのものの評価は病理学的にむづかしく、血管そのものが腫瘍においては異常であり、血管とその周囲の平滑筋には密接な関係があり、clear-cut に血管内侵潤とは証明できないとしている。しかし Kutcher ら⁷⁾ および Brantley ら⁸⁾ は各1例ずつ IVC におよぶ腫瘍栓塞を報告している。

- f) 局所再発

部分切除後も一般に予後は良いとされているが、Farrow ら⁹⁾ および Kragel ら⁹⁾ は部分切除後6カ月および1年後に局所再発で死亡した症例を報告してい

Table 3. Angiomyolipoma with lymphnode involvement

1982	Bloom et al ¹¹⁾	10例集計	予後判明5例 1~11年生存
1983	Hulbert et al ¹²⁾	1例	予後不明
1983	Chawla et al ¹³⁾	1例	予後不明
1984	Dao et al ¹⁴⁾	1例	1年生存
1984	Manabe et al ¹⁵⁾	1例	3年生存
1984	天野 等 ¹⁶⁾	1例	2年10ヶ月生存
1986	自 験 例	1例	4ヶ月生存

る。

g) 細胞の多形性, 核分裂像などについて

平滑筋組織において細胞の多形成, 核分裂像, 巨細胞などがみられることがある。Price ら⁹⁾は AML 30 例中13例が症例提供病理学者によって悪性と診断されたとしている。このうち経過の判明している24例に遠隔転移や再発がなかったとしている。本邦においては境ら¹⁰⁾は腎肉腫Ⅱ型として分類した Pringel 氏病合併肉腫を含む, hamartomatous な origine と考えられるもの10例の予後が良好であることより, malignant angiomyolipoma としての報告やその腫瘍の origine が hamartomatous な症例については腎肉腫とわけて考えたほうがよいとしている。

h) Lymphnode involvement について

腎 AML における lymphnode involvement の文献報告はまれである。Table 3 のごとく著者の調べた範囲内では現在まで内外合わせて15例が報告されており, 自験例が16例目である。予後の判明している15例中8例では1~11年の期間再発なく生存している。現在のところ lymphnode involvement は転移としてではなく腫瘍の多中心性の表現とされている。これらの症例中遠隔転移や死亡例は報告されていないが, 症例数も少なく予後の十分な追跡が必要である。

(2) Enucleation を含む治療法の選択について

結節性硬化症に合併しやすい多発性, 両側性の腎 AML の治療は各症例により異った対応が必要であり, 今回の議論より除外したい。腎 AML の IVP, 血管造影, CT, 超音波検査上の所見は多数報告され, aspiration biopsy の報告もみられる^{17,18)}。特に CT の普及により腎 AML の診断は飛躍的向上し今後大部分の腎 AML は術前に診断されるものと思われる。術前に診断されることにより本腫瘍の治療における最大の目標である, 腎機能の保存および合併症の予防の達成も可能となる。高士らは194例中, 腎摘除術が152例において施行され⁹⁾たとしているが, 今後の AML の治療法は大きく変化されるものと予想される。腎

AML の発育は遅いと Raghavendra ら¹⁹⁾は CT による経時的観察で指摘しているが, 一般に進行性と考えられている。腎機能の低下と腫瘍内外への出血の危険性が本腫瘍が良性とはいえ治療が行なわれる根拠となる。観血的治療の一法としての腫瘍核出術は, Graham ら²⁰⁾が単腎あるいは両側性腎癌に対する腎機能保存術式として発表した方法であるが, 腎 AML に対する本法の施行例は極めて少い。腎 AML においては, 腎実質と明瞭な境界をもって発育することも多く, 本手術法は腎実質の損傷が極めて少ないため, 腎 AML に可能なかぎり適応すべきと考えられる。最近腎 AML の術前診断が可能となったことにより, 本腫瘍に対する塞栓術の報告が行なわれるようになった²¹⁾。本法は腎 AML よりの出血に対しても行なわれている²²⁾。腎機能保存ができ手術がさけられるので非常に魅力的方法であり, 今後普及するものと考えられる。腎 AML は良性腫瘍ではあるが新生物であり, 塞栓術の評価は多数例の長期間 follow up の結果をみて下すべきものと思われる。

結 語

最近経験した腎 AML の2例を報告した。1例において郭清した腎門部リンパ節に AML 像を認めた。他の1例では, 腫瘍核出術を施行した。

文 献

- 1) Hajdu SI and Foote FR Jr : Angiomyolipoma of the kidney: Report of 27 cases and review of the literature. *J Urol* 102 : 396~401, 1996
- 2) 高士宗久・村瀬達良・山本雅憲・傍島 健・三宅弘治・三矢英輔・相馬駿量・荻須文一・渡辺丈治・大竹 浩 : 腎血管筋脂肪腫の3例—本邦194例の統計—。泌尿紀要 30 : 65~75, 1984
- 3) Davis TJ : Parasitic arterial supply to renal angiomyolipoma. *J Urol* 119 : 271~274, 1978
- 4) 渡辺一幹・湊 浩志・有賀藤一郎・木藤光彦・小坂 進 : 巨大血腫を伴った腎 angiomyolipoma の自然破裂による十二指腸損傷の1例。日外会誌 81 : 340, 1980
- 5) Farrow GM, Harrison EG, Utz DC and Jones DR : Renal angiomyolipoma: A clinicopathologic study of 32 cases. *Cancer* 22 : 564~570, 1968
- 6) Price EB and Mostofi FK : Symptomatic angiomyolipoma of the kidney. *Cancer* 18 :

- 761~774, 1965
- 7) Kutcher R, Rosenblatt R, Mitudo SM, Goldman M and Kogan S : Renal angiomyolipoma with sonographic demonstration of extension into the inferior vena cava. *Radiology* **143**: 755~756, 1982
 - 8) Brantley RE, Mashni JW, Bethards RE, Chernys AE and Chung WM: Computerized tomographic demonstration of inferior vena caval tumor thrombus from renal angiomyolipoma. *J Urol* **133**: 836~837, 1985
 - 9) Kragel PJ and Toker C : Infiltrating recurrent renal angiomyolipoma with fatal outcome. *J Urol* **133**: 90~91, 1985
 - 10) 境 優一・野田進士・江藤耕作：腎肉腫について 第1編 本邦腎肉腫報告 125 例についての病理組織学的、及び、臨床的検討. *西日泌尿* **39**: 935~944, 1977
 - 11) Bloom DA, Scardino PT, Ehrlich RM and Waisman J: The significance of lymph node involvement in renal angiomyolipoma. *J Urol* **128**: 1292~1295, 1982
 - 12) Hulbert JC and Graf R Involvement of the spleen by renal angiomyolipoma : metastasis or multicentricity? *J Urol* **130**: 328~329, 1983
 - 13) Chawla K, Silber L and Alexander LL . Renal angiomyolipoma with retroperitoneal adenopathy. *J Natl Med Assoc* **75**: 431~434, 1983
 - 14) Dao AH, Pinto AC, Kirchner FK, Halter SA and Tenn N: Massive nodal involvement in a case of renal angiomyolipoma. *Arch Pathol Lab Med* **108**: 612~613, 1984
 - 15) Manabe T, Tasaka Y, Amano M and Okunobo T : Regional lymphnode involvement in benign renal angiomyolipoma. *Acta Pathol Jpn* **34**: 889~893, 1984
 - 16) 天野正道・奥坊剛士・河原弘之・植田秀雄・田中啓幹：自然破裂1例を含む腎血管筋脂肪腫の2例. *泌尿紀要* **30**: 1813~1825, 1984
 - 17) Glenthøj A and Partoft S: Ultrasound-guided percutaneous aspiration of renal angiomyolipoma. *Acta Cytol* **28**: 265~268, 1984
 - 18) Nguyen GK : Aspiration biopsy cytology of renal angiomyolipoma. *Acta Cytol* **28** : 261~264, 1984
 - 19) Raghavendra BN, Bosniak M and Megibow A: Small angiomyolipoma of the kidney : Sonographic-CT evaluation. *AJR* **141** 575~578, 1983
 - 20) Graham SD Jr and Glenn JF: Enucleative surgery for renal malignancy. *J Urol* **122** : 546~549, 1979
 - 21) 内野 晃・田中 誠・吉田道夫・田中正利・尾本徹男：腎 angiomyolipoma に対する保存的塞栓術の経験. *臨放* **27** : 671~674, 1982
 - 22) Sanchez FW, Vujic I, Ayres RI, Curry NS and Gobien RP : Hemorrhagic renal angiomyolipoma : Superselective renal arterial embolization for preservation of renal function. *Cardiovasc Intervent Radiol* **8** : 39~42, 1985

(1986年3月3日受付)