

膀胱平滑筋肉腫の1例

大雄会第1病院泌尿器科（部長：篠田 孝）

篠 田 育 男
説 田 修
篠 田 孝

岐阜大学医学部泌尿器科学教室（主任：西浦常雄教授）

竹 内 敏 視 ・ 栗 山 学
坂 義 人 ・ 西 浦 常 雄

岐阜市民病院泌尿器科（部長：土井達朗）

土 井 達 朗

A CASE OF LEIOMYOSARCOMA OF THE URINARY BLADDER

Ikuko SHINODA, Osamu SETSUDA and Takashi SHINODA

*From the Department of Urology, Daiyukai First Hospital**(Chief: Dr. T. Shinoda)*

Toshimi TAKEUCHI, Manabu KURIYAMA,

Yoshihito BAN and Tsuneo NISHIMURA

*From the Department of Urology, Gifu University School of Medicine**(Director: Prof. T. Nishiura)*

Tatsuo DOI

*From the Department of Urology, Gifu City Hospital**(Chief: Dr. T. Doi)*

A case of leiomyosarcoma of the urinary bladder in a 33-year-old female is reported. She was admitted with the complaint of gross hematuria. Cystoscopic examination showed a thumb-tip sized mass, located at the dome. CT showed a wide-based tumor at the dome (CT number was 60.2 H.U.). Segmental resection of bladder was performed, followed by radiation and chemotherapy (VCR, ACT-D, CPM and ADM). She is alive without evidence of disease 13 months after surgery.

A case report and review of the literature are presented.

Key words: Leiomyosarcoma, Urinary bladder

は じ め に

膀胱平滑筋肉腫は比較的にまれな疾患であり、本邦においては1938年の和気の報告以来60例の報告をみるにすぎない。最近われわれは33歳の女性に発生した膀胱平滑筋肉腫の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

患者：33歳，女性
初診：1984年3月26日
主訴：肉眼的血尿・排尿終末時痛
家族歴・既往歴：特記すべきことなし
現病歴：1984年3月10日より排尿終末時痛を認

め、更に3月25日より肉眼的血尿に気付いたため、3月26日当科を受診し、翌日入院となった。

入院時所見・

現症 身長 152 cm, 体重 39.5 kg. 眼瞼結膜貧血なし。眼球結膜黄疸なし。頸部、腋窩および鼠径部リンパ節は触知せず。胸部、腹部に理学的異常所見を認めず。

検査成績：

尿所見；蛋白（＋），糖（－），潜血（卅），沈渣 赤血球（卅），白血球 2～3/hpf, 尿培養陰性。

血液所見；赤血球数 $411 \times 10^4/\text{mm}^3$, 白血球数 $5,200/\text{mm}^3$, Hb 12.2 g/dl, Ht 37.9%, 血小板数 $27.3 \times 10^4/\text{mm}^3$, 血清蛋白 6.7 g/dl, T.Bil 0.3 mg/dl, GOT 11 KU, GPT 6 KU, Al-P 3.2 KAunit, LDH 206 W-U, ZTT 5.5 unit, BUN 12.4 mg/dl, クレアチニン 0.84 mg/dl, Na 141 mEq/l, K 4.4 mEq/l, Cl 105 mEq/l, Ca 8.6 mg/dl, P 4.5 mg/dl, FBS 85 ng/dl, CEA (Z-Gel) $\leq 0.5 \text{ ng/ml}$, 出血時間 2分30秒, 凝固時間 11分

尿細胞診；（4回施行）class I～II

PSP 15分値44%, 120分値97%。

膀胱鏡検査所見；膀胱頂部のやや右よりに表面を凝血塊におおわれた拇指頭大の広基性腫瘤がみられた。

X線学的検査；DIP では、上部尿路に異常はみられなかったが、膀胱部に $30 \times 24 \text{ mm}$ の辺縁明瞭な類円形の陰影欠損が認められた（Fig. 1）。膀胱部 CT で、頂部のやや右よりに、膀胱内へ突出する広基性の内部の比較的均一な腫瘤を認めた。腫瘤部の膀胱壁の肥厚がみられ、腫瘤の CT 値は 60.2 Hounsfield Unit であった（Fig. 2）。

婦人科的には、異常所見は認められず、胸部X線写真でも転移は認められなかった。以上より膀胱腫瘍の診断のもとに、1984年4月2日膀胱壁切除術を施行した。

手術所見；全麻下で、下腹部正中切開にて膀胱へ到達した。膀胱と周囲組織との癒着および膀胱漿膜面への腫瘍の浸潤は認められなかった。腫瘍周囲の膀胱壁を約 15 mm 含めて膀胱壁切除をおこなった。

摘出標本：腫瘍は、 $3.0 \times 2.3 \times 1.8 \text{ cm}$, 黄赤色、広基性で弾性軟、表面は浮腫状を呈していた（Fig. 3）。

組織学的所見・腫瘍は膀胱の固有筋層より発生し膀胱腔内へ発育していた（Fig. 4）。浮腫状の間質のなかに異型度の高い紡錘形細胞が認められ、膀胱平滑筋肉腫と診断された（Fig. 5）。なお、断端部には腫瘍細胞を認めなかった。

術後、膀胱部へのリニアック照射と VAC+ADM

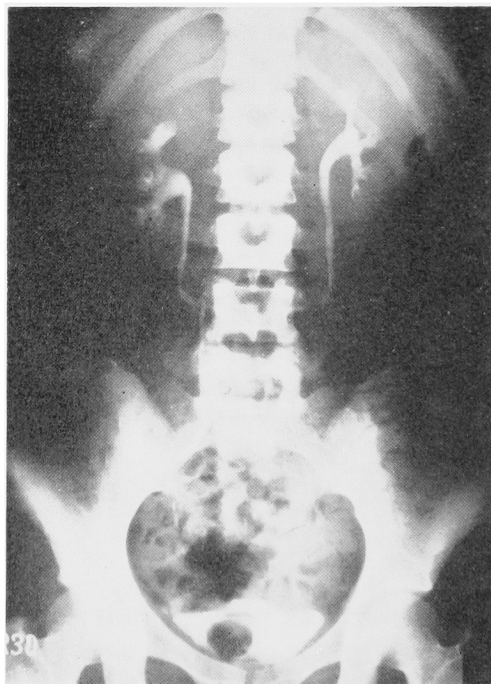


Fig. 1. DIP showed normal upper urinary tract and round filling defect in the urinary bladder.

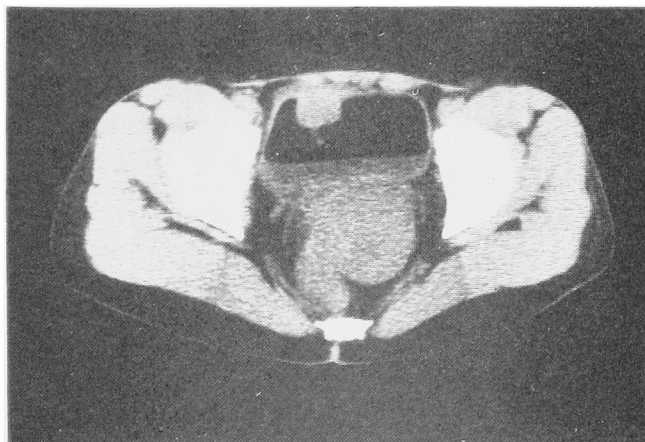


Fig. 2. CT scan revealed a wide-based tumor located at the dome of urinary bladder.

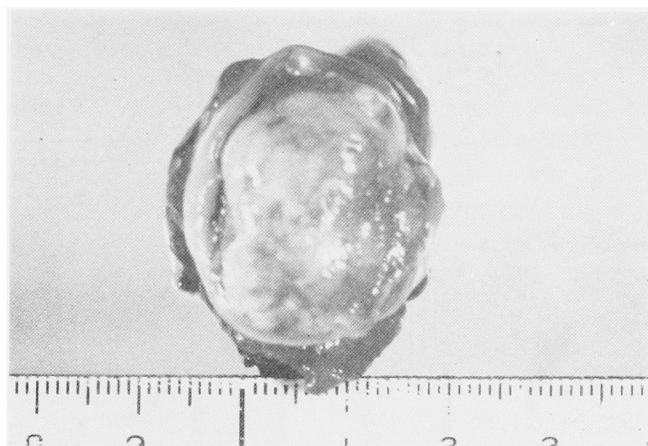


Fig. 3. Gross appearance of surgical specimen

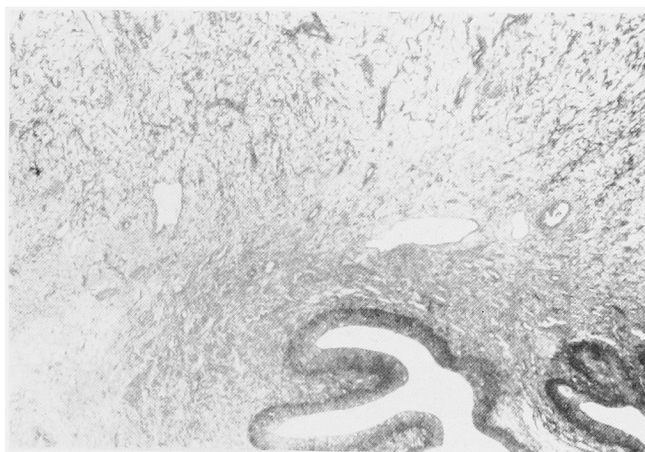


Fig. 4. Microscopic appearance (H.E.; $\times 200$)

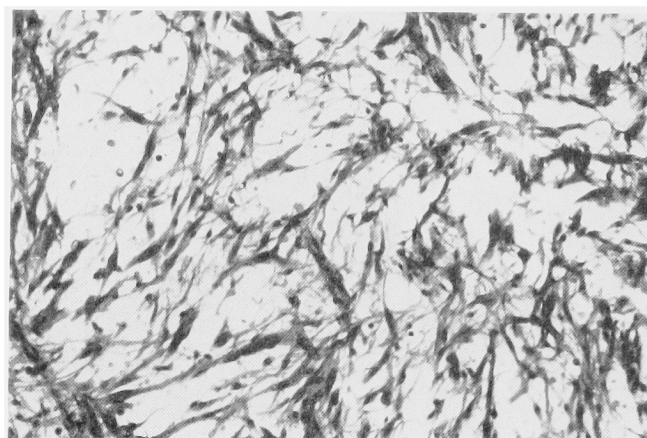


Fig. 5. Microscopic appearance (H.E.; ×400)

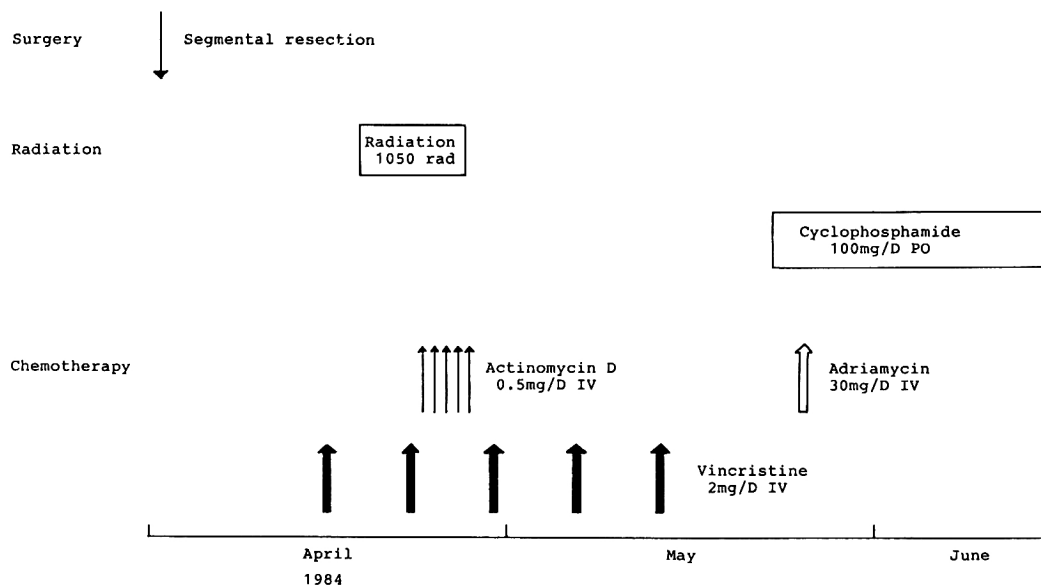


Fig. 6. Postoperative adjuvant therapy for this case

療法を開始したが、白血球減少、知覚異常、そして運動障害のため、リニアックは 1,050 rad、化学療法は 1 クールで中止した (Fig. 6)。退院後は cyclophosphamide 100 mg/日で経過観察しているが、術後 13 カ月の現在、再発・転移を認めず外来通院中である。

考 察

原発性膀胱肉腫は比較的にまれな疾患であり、全膀胱悪性腫瘍中の発生頻度は、諸家の報告によると¹⁻⁵⁾、0.21~2.6%と低い。膀胱肉腫中の平滑筋肉腫の頻度としては、Powers らによれば⁶⁾ 324 例中 43 例 (13%)、上門らによれば⁵⁾ 本邦 203 例中 59 例 (29%) と、横紋筋肉腫と並び高い。今回われわれは、上門らの集

計した 59 例中重複例を除いた 55 例に、その後に報告された自験例 1 例を含む 6 例を加えた 61 例について検討した (Table 1)。

年齢分布を見ると、膀胱平滑筋肉腫は 30 歳代から 60 歳代に多くみられ (Table 2)、膀胱横紋筋肉腫が小児に多い⁷⁾ のと対照的である。性別では、欧米においては男女比が 2 : 1 と男性に多くみられるとの報告がある^{8,9)} が、本邦症例の集計では、男女ほぼ同数で性差はみられなかった (Table 2)。

発生部位では、頂部・側壁・後壁といった伸展性の高いところに多くみられ、三角部・底部・頸部に発生した症例は少なかった (Table 3)。

症状としては、肉眼的血尿及び膀胱刺激症状が圧倒

Table 1. 本邦原発性膀胱平滑筋肉腫報告例（上門ら³⁾の報告以後）

No.	報告者	年齢	性	症状	発生部位	大きさ	治療	経過	誌名
1	水野・ほか	57	♀	血尿	頂部	15.0×13.5 ×8.0cm	膀胱全摘除術 尿管皮膚瘻造設術 再発後化学療法	術後2ヵ月で再発 術後8ヵ月半死亡	日泌尿会誌 75: 537, 1984
2	土井・ほか	70	♂	排尿困難 頻尿 排尿痛 膀胱タンポナーデ	右側壁	9.5×8.0 ×4.0cm	膀胱壁切除術 放射線療法	術後5ヵ月健在	日泌尿会誌 75: 1492, 1984
3	岡根谷・ほか	78	♂	排尿痛 血尿	前壁	拇指頭大	放射線療法後 膀胱壁切除術 放射線療法	術後7ヵ月健在	日泌尿会誌 75: 1509, 1984 臨泌 38: 149-151, 1984
4	萩原・ほか	28	♂	血尿 下腹部痛	右側壁	7.5×6.0 ×4.0cm	膀胱全摘除術 回腸導管造設術	術後6ヵ月 肺転移のため死亡	日泌尿会誌 75: 1686, 1984
5	三原・ほか	46	♂	頻尿 排尿障害 排便障害	三角部	11.0×10.0 ×9.0cm	放射線療法十 化学療法後 膀胱全摘除術 尿管皮膚瘻造設術	不明	日泌尿会誌 75: 1693, 1984
6	自験例	33	♀	血尿 排尿痛	頂部	3.0×2.3 ×1.8cm	膀胱壁切除術 放射線療法 化学療法	術後13ヵ月健在	

Table 2. 年齢分布及び性別

年 齢	男	女	計
0-9歳	1	2	3
10-19歳	2	1	3
20-29歳	1	2	3
30-39歳	6	6	12
40-49歳	6	4	10
50-59歳	8	5	13
60-69歳	3	6	9
70-79歳	2	3	5
80- 歳	1	0	1
計	30	29	59

(不明2例を除く)

Table 3. 発生部位

部 位	例数
頂 部	16
側 壁	16
後 壁	12
三角部	6
前 壁	3
不 明	8
計	61

的に多く、本疾患に特徴的なものはみられなかった。

診断については、一般の膀胱腫瘍と同様に膀胱鏡検査・膀胱造影・CT scan・超音波検査などが行われている。確定診断としては生検 (cold punch・TUR)

がもっとも有効で、粘膜下の十分な深さの生検が必要と考えられる。膀胱鏡検査での腫瘍の形態は様々で、広基性・有茎性のいずれもみられるが、Tripathi ら¹⁰⁾は、"a mushroom shaped tumor with central sloughing and calcific encrustation" が肉腫を示唆すると述べている。CT scan では、膀胱癌でのCT 値が 30~80 H.U. を示すとされている¹¹⁾が、本症例での CT 値は 60.2 H.U. とあきらかな差異を認めなかった。

進行様式としては、局所浸潤・再発が多く認められるが、遠隔転移も肺^{5,12-18)}・骨⁵⁾・リンパ節¹⁹⁾などにみられる。

治療法としては、手術療法がもっとも根治的治療であり、5 cm 以下のものでは膀胱壁切除術、それ以上のもものでは膀胱全摘除術が適応であると Wilson ら²⁰⁾は指摘している。本疾患は頂部・側壁・後壁に好発することもあり、腫瘍が小さい場合には腫瘍周囲の正常粘膜を十分に含めた膀胱壁切除術が可能と考えられる。ただし、十分な膀胱壁切除術が困難な場合には、本疾患の予後が不良であることを考慮に入れ、早期に膀胱全摘除術を行うことが望ましいと考えられる。なお、根治的膀胱前立腺摘除後5ヵ月で尿道に再発した症例²¹⁾も報告されており、尿道摘除も考慮すべきと思われる。

術後の化学療法併用例も多く認められ、化学療法剤としては、VCR・ACT-D・CPM の併用がもっとも多くみられる。小児横紋筋肉腫に対しては、VAC²²⁾・

Tumor size	Prognosis (year)	Treatment											
		R	R + C	T R	TUR + C	S R	S R + C	S R + R	S R + C + R	T C	T C + C	T C + R	T C + C + R
≥5cm	Ⅲ 5					0							
	Ⅲ 2												
	Ⅲ 1								0		0		
	Ⅲ 0.5					0	0						
	<0.5	0			0		0 0	0 ●	0			0	
<5cm	Ⅲ 5												
	Ⅲ 2			●		0		●					0
	Ⅲ 1					0	0 0						
	Ⅲ 0.5		0							● ●	0		0
	<0.5			0		0	●	0		0 ● ●		0 0	
Unknown	Ⅲ 5						0						
	Ⅲ 2							0		0			
	Ⅲ 1								0				
	Ⅲ 0.5							0		0			●
	<0.5					0	0						

R Radiation, C : Chemotherapy, TR Tumor resection, SR Segmental resection, TC Total cystectomy
 0 No evident disease, ● Alive with disease, ● Dead

Fig. 7. The prognosis according to tumor size and treatments

T2 プロトコール²³⁾・PVB²⁴⁾あるいはCYVADIC²²⁾といった併用療法が有効であるとの報告があるが、平滑筋肉腫に対しては確立された化学療法はなく、横紋筋肉腫に対して有効とされる化学療法を流用しているのが現状と思われる。

本邦症例における腫瘍の大きさと治療法による予後の違いを検討したが (Fig. 7), 観察期間の短い症例が多いためかあきらかな違いは認められなかった。一般に予後不良といわれるものの、欧米では長期間再発なく健在という症例が少なからず報告されており²⁵⁻²⁷⁾、本邦でも術後8年5カ月健在という大北²⁸⁾の報告もみられ、積極的な治療と長期にわたる観察が必要と考えられる。

おわりに

33歳の女性で膀胱壁切除術を施行した膀胱平滑筋肉腫の1例を報告し、若干の文献的考察を行った。本症例は術後13カ月を経過した現在、再発もみられず健在である。

本論文の要旨は、第146回日本泌尿器科学会東海地方会で発表した。

文 献

- 1) Dean AL, Mostofi FK, Thomson RV and Clark ML : A restudy of the first fourteen hundred tumors in the bladder tumor registry, armed forces institute of pathology. J Urol **71**: 571~590, 1954
- 2) Melicow MM Tumors of the urinary bladder : a clinicopathological analysis of over 2500 specimens and biopsies. J Urol **74**: 498~521, 1955
- 3) Thompson IM and Coppridge AJ : Bladder sarcoma. J Urol **82**: 329~332, 1959
- 4) 市川篤二・膀胱腫瘍の遠隔成績調査. 日泌尿会誌 **49**: 602~610, 1958
- 5) 上門康成・小川隆敏・平野敦之 : 膀胱肉腫5例の治療経験. 泌尿紀要 **30**: 1085~1093, 1984
- 6) Powers JH, Hawn CVZ and Carter RD : Osteogenic sarcoma and transitional cell carcinoma occurring simultaneously in the urinary bladder report of a case. J Urol **76**: 263~269, 1956
- 7) Legier JF Botryoid sarcoma and rhabdo-

- myosarcoma of the bladder : review of the literature and report of 3 cases. *J Urol* **86**: 583~590, 1961
- 8) Patterson DE and Barret DM: Leiomyosarcoma of urinary bladder. *Urology* **21**: 367~369, 1983
 - 9) Weitzner S : Leiomyosarcoma of urinary bladder in children. *Urology* **12**: 450~452, 1978
 - 10) Tripathi VNP and Dick VS : Primary sarcoma of the urogenital system in adults. *J Urol* **101**: 808~904, 1969
 - 11) 杉村一誠・西尾正一・前川正信・中村健治：泌尿器科領域における CT の応用（第1報）. 泌尿紀要 **27**: 27~33, 1981
 - 12) Ramey WP, Ashburn LL, Grabstald H and Haines JS: Myosarcoma of the urinary bladder. *J Urol* **70**: 906~913, 1953
 - 13) Silbar JD and Silbar SJ : Leiomyosarcoma of bladder : three case reports and a review of literature. *J Urol* **73**: 103~111, 1955
 - 14) Uehling D and Frable WJ : Myosarcoma of the bladder report of two cases. *J Urol* **91**: 354~356, 1964
 - 15) 和氣 徹：小児膀胱ノ所謂葡萄状肉腫. 台医誌 **37**: 1864~1869, 1938
 - 16) 加藤修爾・児玉直彦・塚本泰司：膀胱平滑筋肉腫の1剖検例. 日泌尿会誌 **66**: 798, 1975
 - 17) 大蔵とく子・鏡味数行・小沼昌之・張 瓏瑛：膀胱平滑筋肉腫が肺に転移した1症例. 小児科診療 **40**: 1101, 1977
 - 18) 萩原 明・松本 泰・濱田吉通・日高良一・清水舜一：膀胱平滑筋肉腫の1例. 日泌尿会誌 **75**: 1686, 1984
 - 19) Reeves JF Jr, Powell EB and Powell NB : Leiomyosarcoma of the bladder: case report with autopsy. *J Urol* **97**: 486~489, 1967
 - 20) Wilson TM, Fauver HE and Weigel JW : Leiomyosarcoma of urinary bladder. *Urology* **13**: 565~567, 1979
 - 21) Alabaster AH, Jordan WP Jr, Soloway MS, Shippel RM and Young JM : Leiomyosarcoma of the bladder and subsequent urethral recurrence. *J Urol* **125**: 583~585, 1981
 - 22) Wilbur JR, Sutow WW, Sullivan M and Gottlieb JA : Chemotherapy of sarcomas. *Cancer* **36**: 765~769, 1975
 - 23) Ghavimi F, Exelby RR, D'Angio GJ, Cham W, Lieberman PH, Tan C, Mike V and Murphy ML: Multidisciplinary treatment of embryonal rhabdomyosarcoma in children. *Cancer* **35**: 677~686, 1975
 - 24) 多和昭雄・藪田玲子・勇村啓子・土井 悟・池田輝生・岡田 正・桜井幹己 Vinblastine, Cisplatin, Bleomycin の3剤併用療法が著効を示した膀胱原発横紋筋肉腫の1例. 癌と化学療法 **9**: 2222~2228, 1982
 - 25) Brown HE: Leiomyosarcoma of the bladder followup report of two cases with 4 and 10 years' survival. *J Urol* **94**: 247~251, 1965
 - 26) Mackenzie AR, Whitmore WF Jr and Melamed MR: Myosarcoma of the bladder and prostate. *Cancer* **22**: 833~844, 1968
 - 27) Swartz DA, Johnson DE, Ayala AG and Watkins DL : Bladder leiomyosarcoma a review of 10 cases with 5-year followup. *J Urol* **133**: 200~202, 1985
 - 28) 大北健逸：小児膀胱平滑筋肉腫一術後8年尚健在な女兒の1例一. 泌尿紀要 **6**: 667~672, 1960
(1985年5月14日受付)