

膀胱前腔および尿道神経線維腫の1例

大阪市立大学医学部泌尿器科学教室（主任：前川正信教授）

山 本 啓 介

安 本 亮 二

岸 本 武 利

前 川 正 信

市立豊中病院泌尿器科

中 西 純 造

PREVESICAL AND URETHRAL NEUROFIBROMA:
REPORT OF A CASE

Keisuke YAMAMOTO, Ryoji YASUMOTO,

Taketoshi KISHIMOTO and Masanobu MAEKAWA

*From the Department of Urology, Osaka City University Medical School**(Director: Prof. M. Maekawa, M. D.)*

Junzo NAKANISHI

From the Department of Urology, Toyonaka Municipal Hospital

A 27-year-old housewife visited our clinic complaining of lower abdominal mass, when urethral tumor was found. Urological examination disclosed the mass should be in the prevesical space.

Operative resection was performed on both tumors which were histologically diagnosed as neurofibroma.

Reviewing literatures, the collections of prevesical tumor and retroperitoneal neurofibroma were made.

緒 言

後腹膜腫瘍は、一般腫瘍の約0.2%を占める比較的にまれな疾患であり、なかでも神経線維腫はきわめて少なく、本邦ではわずかに12例が報告されているに過ぎない。今回われわれは、膀胱前腔および尿道に発生した神経線維腫の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：菊○博○，27歳，主婦。
初診：1977年2月21日。
主訴：下腹部腫瘍。
家族歴，既往歴：特記すべきことなし。
現病歴：1975年2月に無月経のため近医を受診したところ，妊娠と診断されたが同時に右卵巣腫瘍を指摘

され，止むなく人工妊娠中絶手術を受けた。1976年2月に自然流産したため，精査を希望して当院婦人科を受診したが，特に婦人科的な異常は指摘されず，後腹膜腫瘍の疑いで当科を紹介された。

現症：体格栄養中等度。眼瞼結膜に貧血を認めず。脈拍は76/分，整，緊張良好。胸部理学的所見には異常を認めない。腹部は平坦，軟で，下腹部正中線よりやや右側に軽度の圧痛を伴った小児頭大の腫瘍を触知し，その境界は比較的明瞭，表面平滑，弾性軟であるが，波動性および可動性を欠く。外陰部には視診上異常はないが，膣前壁を手指にて圧迫すると，エンドウ大の，正常の尿道粘膜に覆れた表面平滑，弾性軟，暗赤色の腫瘍が外尿道口より突出するのが認められた。しかし，その他の部位には Recklinghausen 氏病に見られるような腫瘍あるいは皮膚の色素沈着などは認められな

い。

入院時検査成績；血圧 110/70 mmHg, ECG に異常所見を認めず。赤沈 1 時間値 4 mm, 2 時間値 6 mm. 血液所見：赤血球数 $456 \times 10^4/\text{mm}^3$, 白血球数 $9000/\text{mm}^3$, 血色素量 13.5 g/dl, ヘマトクリット値 40.0%, 血小板数 $33.7 \times 10^4/\text{mm}^3$, 白血球分画異常なし。血液生化学的所見；Na 140 mEq/L, K 3.6 mEq/L, Cl 106 mEq/L, Ca 4.2 mEq/L, TSP 6.7 g/dl, total Bilirubin 0.7 mg/dl, GOT 12 U, GPT 8 U, TTT 2.4 U, ZTT 6.3 U, BUN 13.5 mg/dl, 血清クレアチニン 0.8 mg/dl. 腎機能検査；PSP 15 分値 35.5%, 120 分値 67.5%, Ccr 72 ml/min. 尿所見；淡黄色透明, 酸性, 糖 (-), 蛋白 (±), 潜血 (-), 沈渣に異常を認めず。

膀胱鏡所見：容量 250 ml. 膀胱粘膜および尿管口には異常を認めないが, 前壁より右側壁にかけて外部からの圧迫を思わせる所見が認められた。

レ線所見：胸部および、腎部・膀胱部単純レ線像に異常を認めず。排泄性尿路造影画像でも、造影剤の排泄は良好で、腎盂腎杯も正常であるが (Fig. 1), 膀胱には右前側方よりの圧排像が見られた (Fig. 2~3). 排尿性膀胱尿道造影画像では、外尿道口付近に $2.5 \times 1.5 \text{ cm}$, 楕円形の境界明瞭な陰影欠損を認める (Fig. 4). また、超音波エコーによる検査では、腫瘍は充実性で、膀胱とは別に膀胱前腔に存在することが示唆された。

以上の所見より、膀胱前腔腫瘍および尿道腫瘍と診断し、手術を施行した。

手術所見；全麻下にて下腹部正中切開にて膀胱前腔に達した。腫瘍は手拵大、弾性軟で、周囲組織および膀胱との癒着はなく、容易に摘出された。尿道の腫瘍は後壁より発生しており膀胱前腔腫瘍とは独立のものであったので、外尿道口を括弧電気メスで切除した。

摘出標本；膀胱前腔の腫瘍は、薄い線維性被膜に覆われ、大きさは $10.5 \times 7 \times 7 \text{ cm}$ で、重量は 220 g であった。断面は灰白色、充実性、弾性軟で均一の構造を示し、壊死、色素沈着などは認められなかった。尿道腫瘍は $1.8 \times 1.5 \times 0.7 \text{ cm}$ の大きさで、重量 3 g, 割

面は膀胱前腔の腫瘍と同様の所見であった (Fig. 5)。

組織学的所見；組織学的には、いずれの腫瘍も同様の所見を示した。すなわち間質には膠原線維が比較的少なく、Elastica-Van Gieson 染色で黄染する繊細な線維が、波状、渦状に走り核は紡錘形ないし扁平で、曲玉様に弯曲する傾向を示した。また観兵式様ないし柵状と呼ばれるような配列を示していないことから神経線維腫と診断された (Fig. 6)。

術後経過；順調に経過し、術後14日目に軽快退院し、術後約2年半を経過しているが腫瘍の再発、皮膚の色素斑の出現などの異常所見は見られない。

考 察

1. 膀胱前腔腫瘍

後腹膜腫瘍は、上界を横隔膜、下界を骨盤隔膜とするかなり広範囲な領域に発生する腫瘍であるが、その発生部位は倉上ら¹⁰⁾の集計では、左側、右側、中央部、骨盤腔の順であり、骨盤腔に発生することは比較的まれである。また骨盤腔の腫瘍も膀胱後腔に発生したものが多く、三好ら¹⁵⁾は64例を集計しているが、膀胱前腔に発生したものはまれで、Table 1 に示すごとく5例にすぎない。

後腹膜腫瘍は、Table 2 に示すように、本邦では、やや良性腫瘍が多い傾向が見られるのに対し、欧米の文献では、Pack の85.5%を占めるという報告¹⁶⁾を筆頭に、悪性腫瘍の占める割合が多くなっている。また、膀胱後腔腫瘍も三好ら¹⁵⁾によれば、良性35.9%, 悪性64.0%であり悪性腫瘍が多く発生しているが、膀胱前腔腫瘍では全例が良性である。組織像は、平滑筋腫3例、奇形腫および神経線維腫が各1例である。性差は認められず、発症年齢は、30歳前後に集中している。主訴は、腫瘍による圧迫症状で、排尿困難を2例に認めた。

2. 後腹膜神経線維腫

文献上、後腹膜腔に発生したとする神経線維腫の報告を集計したものが Table 3 である。自験例は第13例目に相当する。神経線維腫の後腹膜良性腫瘍の中に

Table 1. Prevesial tumor.

Author & year	Age	Sex	Chief complaint	Size	Histology
Mitsuya et al. 1969	29	M	Dysuria	Infant's head	Teratoma
Boku et al. 1975	33	F	Lower abdominal pain	69 g	Leiomyoma
Idemura 1975	35	M	Lower abdominal mass	1570 g	Leiomyoma
Kuma et al. 1978	55	F	Dysuria	45 g	Leiomyoma
Yamamoto et al. 1979	27	F	Lower abdominal mass	220 g	Neurofibroma

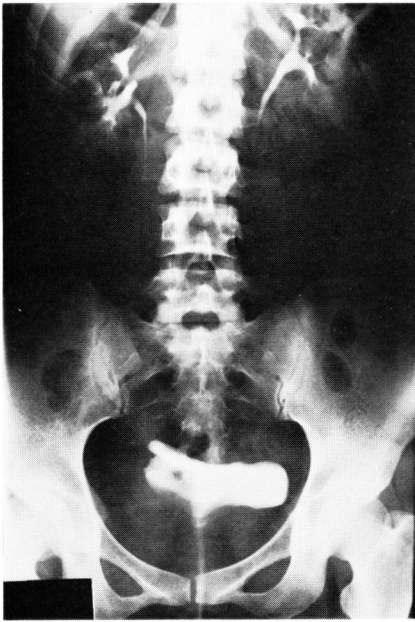


Fig. 1. IVP, 腎尿管には異常を認めない.



Fig. 2. 膀胱造影 正面像. 右前方よりの圧排像を認める.



Fig. 3. 膀胱造影斜位像. 前方よりの圧排像を認める.

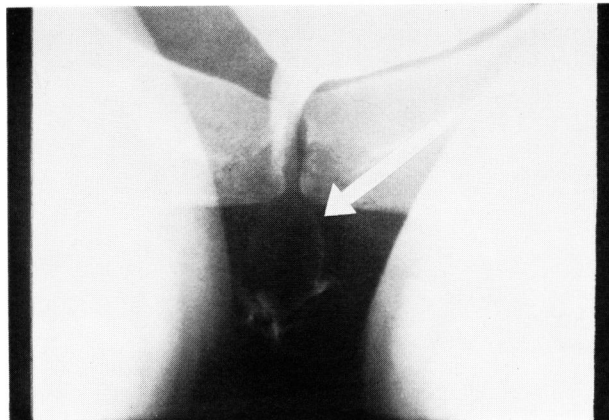


Fig. 4. 排尿時膀胱尿道造影. 外尿道口付近に橢円形の腫瘤陰影を認む.

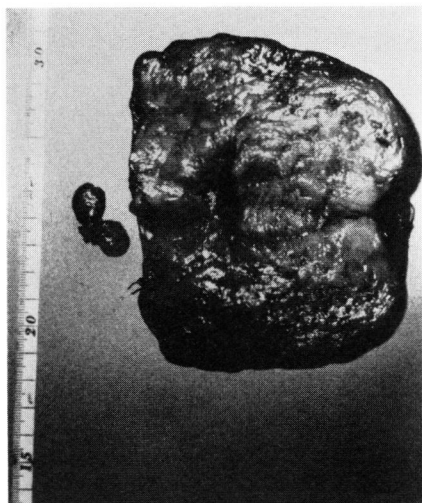


Fig. 5. 摘出標本. 左 尿道腫瘍, 右 膀胱前腔腫瘍.

占める割合は, Scanlan,²⁰⁾ Wirbatzら⁴⁾の集計によれば, おのおの約 4.0%, 約 1.7% で比較的な腫瘍であるといえることができる.

以下, 詳細の明らかなでない 2 例を除き, 11 例の神経線維腫本邦症例について若干の考察を加えたい.

(1) 年齢, 性

年齢分布は, 13 歳より 66 歳までで平均 34.7 歳である. 50 歳未満の症例は, 9 例, 81.8% であり, 比較的若年層に好発する傾向を認める. 男女比は 4 対 7 で, 女性に多く認められている.

(2) 主訴, 臨床症状

全例腹部腫瘍を主訴としていたことは注目される. 一般に後腹膜腫瘍において現れる症状は, 腫瘍による圧迫症状でありその占める部位により, 神経系, 血管系, 泌尿器系, 消化器系, 呼吸器系などに影響を及ぼし, 症状を発現するものであり, 神経線維腫も腫瘍独

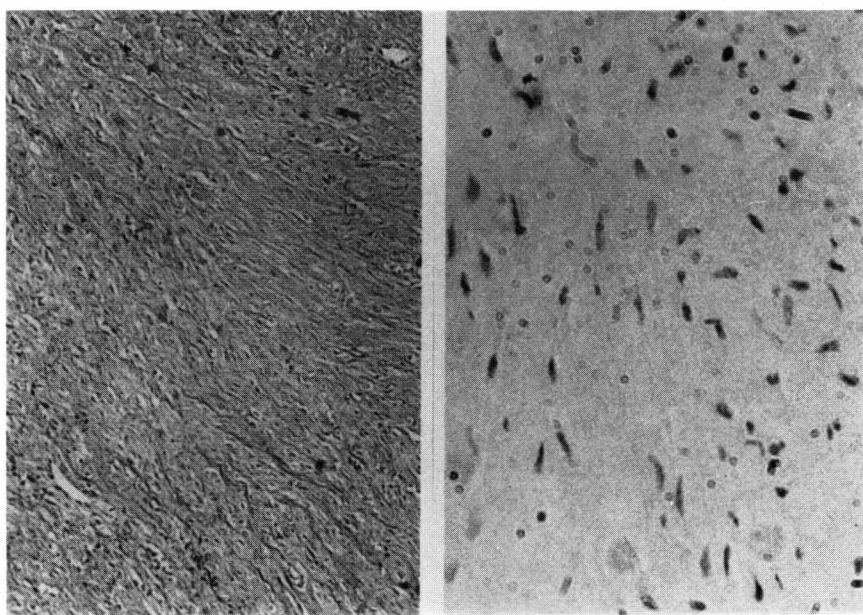


Fig. 6. 左, Elastica-Van Gieson 染色弱拡像, 右, H. E. 染色強拡像

Table 2. Retroperitoneal tumor.

Author & year	Case	Benign	Malignant
Kusunoki 1961	351	57.6%	42.4%
Sugimura 1966	265	55.5	44.5
Pack et al. 1954	120	14.5	85.7
Scanlan 1959	688	22.1	77.9
Wirbatz et al. 1963	3000	34.0	66.0

自の症状はなく, 一般の後腹膜腫瘍としての性質を示している.

(3) 発生部位, 重量

発生部位は, 右側 3 例, 左側 4 例, 中央部 3 例, 骨盤腔 1 例であり, 倉上ら¹⁰⁾の後腹膜腫瘍全体についての集計と, ほぼ同様の分布を示している. 重量は 50 g から 3300 g までであるが, 500 g を超えるものも 4 例あり, 巨大化する傾向を示す.

Table 3. Retroperitoneal neurofibroma.

	Author & year	Age	Sex	Site	Size	Procedure
1.	Saito et al.	1964	17	F	Right	Extirpation
2.*	Saito et al.	1964	13	F	Middle	Exploratory laparotomy
3.	Saito et al.	1964	40	M	Middle	Extirpation
4.	Saito et al.	1964	45	F	Left	Concervative
5.*	Maeda	1964	31	M	Left	10x8x5cm Extirpation
6.	Ito et al.	1965	66	M	Middle	21x16x15cm 1300g Extirpation
7.	Matsumoto et al.	1966	61	F	Left	6x6x7cm 50g Extirpation
8.*	Imai et al.	1967	22	F	Right	3300g** Exploratory laparotomy
9.*	Misawa et al.	1968	47	M	Right	620g Extirpation
10.	Hayashi et al.	1971			Adult head	
11.	Tanoda et al.	1972	13	F	Left	630g Extirpation
12.*	Sigenobu et al.	1974				
13.	Yamamoto et al.	1979	27	F	Pelvis	10.5x7x5 cm 220g Extirpation

* associated with Von Recklinghausen's disease

** autopsy

(4) 診断, 治療

後腹膜腫瘍の診断は, 各種泌尿器科学的検査, 超音波エコー, 胃腸造影, 血管造影, CT scanなどを併用し, 現症を加味すれば, 部位, 大きさ, 周囲臓器との関係, 嚢胞, 膿瘍などとの鑑別などは比較的容易になされるが, 悪性度の鑑別および腫瘍の組織像を術前に診断することは困難であることが多いとされている。前者については, 血管造影, CT scan, 赤沈の亢進などが有力であるとされるが, 後者につけては, 経皮的生検法が, ほぼ唯一の診断法であるといえるが, 本法に伴う危険性, 得られる情報の価値などから, 行なわれることは少ないようである。

治療に関しては一般腫瘍と同様に, 早期診断, 早期手術が望まれる。一般に後腹膜腫瘍は発見されたときにはかなりの大きさとなっており, 良性腫瘍の場合でも周囲臓器である大血管, 腎, 尿管, 脾などへの圧迫, 癒着により, 摘出が困難となるため, 発見したときが手術適応の時期であるとされる。

(5) 合併症

Gonzalez-Angulo²⁾によれば, 下部尿路に発生した神経線維腫25例中, 18例に Recklinghausen 氏病を合併したとしているが, 本集計でも, 不明の2例を除く11例中5例に合併しており, かなり高率となっている。Recklinghausen 氏病は新村¹⁷⁾の定義によれば, 「皮膚および(もしくは)神経に多発する神経線維腫

に加えて, 特有色素斑を有する遺伝性の疾患」である。自験例は, 尿道に神経線維腫を合併していたが, cutaneous neurofibroma, 大レックリングハウゼン斑, 小レックリングハウゼン斑, 骨病変なども認められず, Recklinghausen 氏病を否定した。また, 他の合併症では, 胃癌2例, 血管肉腫1例, 直腸癌1例と, 高率に悪性腫瘍を合併していることが注目される。

(6) 発生母地

nerve sheath origin の良性腫瘍として一括される神経鞘腫と神経線維腫の発生母地についてはなお定説はなく, 種々の説が存在する。代表的なものは, 神経鞘腫はシュワン細胞より発生し, 神経線維腫は神経線維内鞘の結合組織より発生する全く別の腫瘍であるとする説。また両腫瘍は, ともにシュワン細胞から発生し, 細胞の分化の差により形態が異なるという説および, 両腫瘍は同一の疾患であり, シュワン細胞と結合組織の割合の違いにより組織像を異にするという説がある。電顕的にも, 両腫瘍の移行形ともいえるべき, 全く異同を認めえないものも存在し, 後2者の説をとるものが多いようである。

3. 尿道神経線維腫

自験例に合併していた尿道の神経線維腫は, 膀胱前腔の腫瘍とは連続性を認めず, 原発性尿道腫瘍と診断した。

本邦における女子尿道の非上皮性良性腫瘍は, 尿道

悪性腫瘍の約 1/5 の頻度といわれ、まれな疾患であり、広野ら⁴⁾、森岡ら¹⁶⁾の1976年までの集計でも56例が報告されているにすぎない。そして組織学的には、平滑筋腫および線維筋腫が多く、両者を合わせると約70%を占める。しかし尿道神経線維腫は2例の報告を認めるのみである。また、この2例も自験例に見られた後腹膜神経線維腫は合併しておらず、合併例は本邦第1例目と思われる。なお、著者の集計した後腹膜神経線維腫本邦報告例12例にも、尿道神経線維腫の合併は認めていない。

臨床症状として多く見られるのは、腫瘍形成、疼痛、出血、排尿障害などであるが、自験例は、大きさ $1.8 \times 1.5 \times 0.7$ cm と小さく、無症状で経過し膀胱鏡検査時に偶然発見されたものである。

結 語

膀胱前腔および尿道にみられた神経線維腫の1例を報告するとともに、膀胱前腔腫瘍および後腹膜の神経線維腫の本邦報告例を集計し、あわせて若干の文献的考察を行なった。

文 献

- 1) 朴 勺・ほか：日泌尿会誌，**66**：519，1975.
- 2) Gonzalez-Angulo, A. et al.: J. Urol., **89**:804, 1963.
- 3) 林 淳治・ほか：日本外科宝函，**40**：119，1971.
- 4) 広野晴彦・ほか：臨泌，**15**：433，1973.
- 5) 出村 愷：日泌尿会誌，**66**：519，1975.
- 6) 伊藤良巳・ほか：外科，**28**：882，1966.
- 7) 今井史規・ほか：日内会誌，**56**：401，1967.
- 8) 熊 佳伸・ほか：臨泌，**32**：875，1978.
- 9) 楠 隆光：日本 泌尿器科 全書，8巻I, p. 145, 金原出版，南江堂，1961.
- 10) 倉上龍夫・ほか：外科，**14**：533，1952.
- 11) 前田日出三：日内会誌，**53**：388，1964.
- 12) 松本大淵・ほか：外科，**28**：425，1966.
- 13) 三沢恵一・ほか：日本外科宝函，**37**：751，1968.
- 14) 三矢英輔・ほか：日泌尿会誌，**60**：93，1969.
- 15) 三好信行・ほか：西日泌尿，**36**：590，1974.
- 16) 森岡政明・ほか：臨泌，**30**：883，1976.
- 17) 新村真人：皮膚臨床，**15**：433，1973.
- 18) Pack, G. T. et al.: Internat. Abst. Surge., **99**：206，1954.
- 19) 斎藤 晃・ほか：日本外科宝函，**33**：696，1964.
- 20) Scanlan, D. B.: J. Urol., **81**：740，1959.
- 21) 重信雅春・ほか：岡山医学会誌，**81**：175，1974.
- 22) 杉村克治：臨床皮泌，**20**：717，1966.
- 23) 角田和之・ほか：西日泌尿，**35**：57，1973.
- 24) Wirvatz, W. et al.: Langenbecks Arch. klin. Chir., **302**：827，1963.

(1979年10月26日受付)