

石灰化をともなった多房性腎嚢胞の1例

旭中央病院泌尿器科（部長：村上信乃）

山 西 友 典 ・ 高 原 正 信

五十嵐 辰 男 ・ 村 上 信 乃

旭中央病院内科（部長：吉田象二）

鈴 木 良 一

千葉大学医学部泌尿器科学教室（主任：島崎 淳教授）

島 崎 淳

千葉大学医学部病理学教室

松 寄 理 ・ 長 尾 孝 一

A CASE OF MULTILOCULAR RENAL CYST
WITH CALCIFICATIONTomonori YAMANISHI, Masanobu TAKAHARA, Tatsuo IGARASHI
and Shino MURAKAMI*From the Department of Urology, Asahi General Hospital**(Chief: Dr. S. Murakami)*

Ryoichi SUZUKI

*From the Department of Medicine, Asahi General Hospital**(Chief: Dr. S. Yoshida)*

Jun SHIMAZAKI

*From the Department of Urology, School of Medicine, Chiba University**(Director: Prof. J. Shimazaki)*

Osamu MATSUZAKI and Koichi NAGAO

From the Department of Pathology, School of Medicine, Chiba University

A 55-year-old woman was incidentally found to have a calcified right renal mass on ultrasonography.

A plain film of the abdomen revealed a 3.5×4.4 cm, curvilinear calcification in the midportion of the right kidney, and an excretory urogram showed no compression or distortion of the pelvocalyceal system.

Computed tomography demonstrated a low density renal mass associated with both peripheral and central calcification. Renal arteriogram revealed a hypovascular mass.

Right nephrectomy was performed and the multilocular renal cyst with calcification was confirmed histologically.

In the Japanese literature, 53 cases of multilocular renal cyst have been reported, but calcification of the multilocular renal cyst seems to be the first as far as we know.

Key words: Multilocular renal cyst, Calcification

は じ め に

多房性腎嚢胞は稀な疾患とされており、本邦での症例は自験例を含めてこれまで53例報告されているのみであり、さらに石灰化をともなった多房性腎嚢胞は、本邦ではまだ報告例を見ていない。今回われわれは、石灰化をともなった多房性腎嚢胞の1例を経験したので報告する。

症 例

患者 55歳, 女性

主訴: 右腎腫瘍

家族歴: 弟が肺癌

既往歴: 1984年6月 十二指腸潰瘍

現病歴: 1984年10月17日定期健康診断にて肝機能障害が疑われたため旭中央病院内科を受診した。10月31日腹部超音波検査施行したところ、右腎中央部に石灰化をともなう腫瘍を認めたため、11月4日精査目的に入院した。

入院時現症: 身長 146.2 cm. 体重 55 kg. 体格栄養中等度。血圧 160/100 mm Hg. 脈拍 86/min. 整。呼吸数 22/min. 胸部の身体的所見は異常なく、腹部も腫瘍触知、圧痛などの異常は認めなかった。

入院時検査成績: 血沈: 1時間値 21 mm, 2時間値 45 mm, 末梢血: WBC 3,900/mm³, RBC 4.18×10⁶/mm³, Hb 12.7 g/dl, Hct 40.8%, PLT 20.0×10⁴/mm³.

血液生化学: TP 7.0 g/dl, Alb 4.1 g/dl, GOT 14 IU/l, GPT 28 IU/l, LDH 357 IU/l, Al-p 169 IU/l, CHE 5.4 IU/l, T-Bil 0.6 mg/dl, BUN 4.4 mg/dl, Creat 0.6, U. A. 4.4 mg/dl, Na 144 mEq/l, K 4.5 mEq/l Cl 105 mEq/l, FBS 85 mg/dl.

血清学: Wa-R (-), HB-Ag Ab (-), CRP (+)

尿所見: 蛋白 (-), 糖 (-), ケトン体 (-)

尿沈査: RBC 0~2 個/数視野, WBC 2~4 個/数視野 Ccr 103 ml/min, PSP 試験44% (15分), 15% (30分), 17% (60分), 11% (120分)

腹部超音波検査: 右腎中央外側に突出する様に弧状の acoustic shadow をともなった strong echo を認めた。内部の詳細は acoustic shadow のために不明瞭だが、けっして無エコーではなく、充実性であるように思われた。また左腎、肝臓、肝臓、胆嚢、胆管、脾臓に異常は認められなかった (Fig. 1)。

X線検査所見: 胸部X線は異常がなかった。KUB では右腎中央部外側に 3.5×4.4 cm の輪状石灰化陰

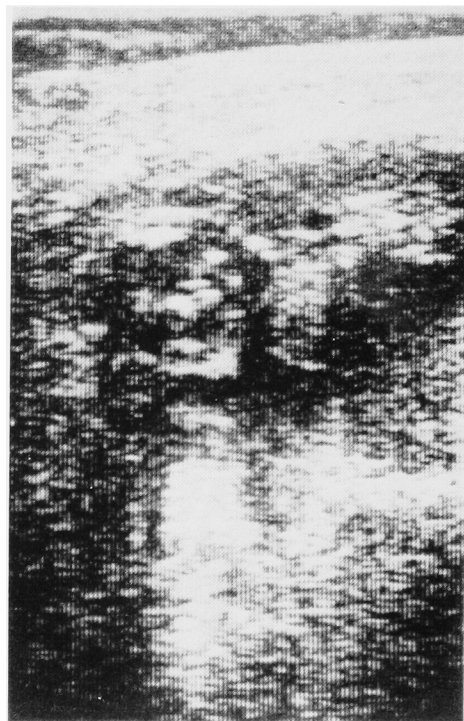


Fig. 1. 超音波検査では右腎中央部外側に弧状の acoustic shadow を伴った strong echo を認めた。

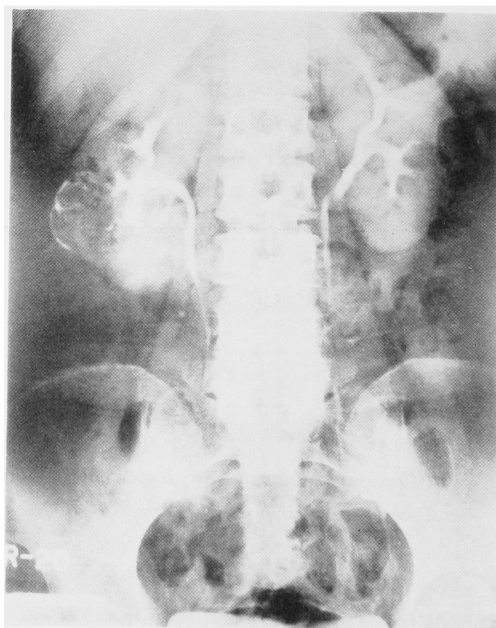


Fig. 2. DIP では右腎中央に 3.5×4.4 cm の輪状石灰化陰影が認められたが、腎盂腎杯像には圧排変形は認められなかった。

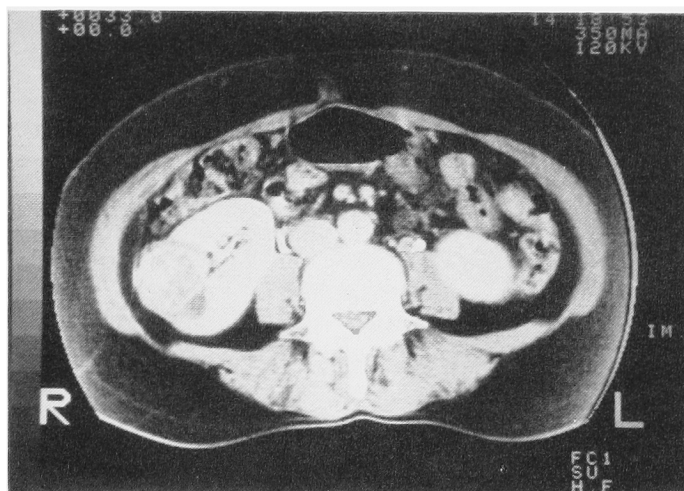


Fig. 3. CT では右腎中央部外側に、輪状および内部に石灰化を伴った、境界明瞭な低 CT 値を示す領域を認めた。contrast enhanced CT ではその内部は不規則な CT 値の上昇を認めた。

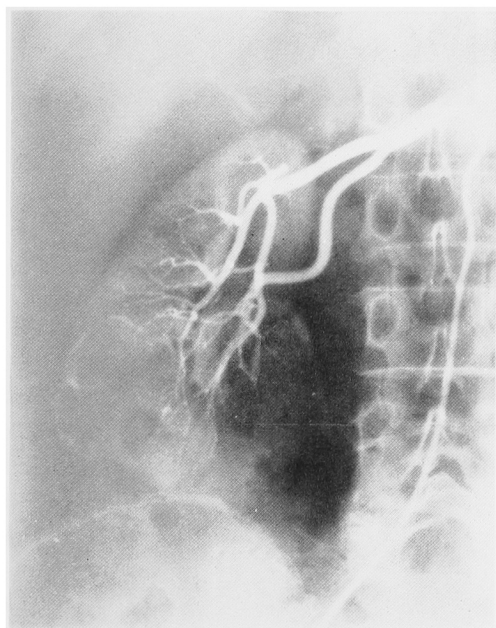


Fig. 4. 選択的右腎動脈造影では、腫瘤内部は無血管性であった。

影が認められた。DIP では腎盂腎杯像に圧排、変形は認められなかった (Fig. 2)。CT スキャンでは右腎中央部外側に輪状の石灰化腫瘤を認め、内部にも不規則に石灰化した隔壁が認められた。contrast enhanced CT では、境界明瞭な低 CT 値を示す領域を認め、その内部では不規則な CT 値の上昇を認めた (Fig. 3)。腎動脈造影では、腫瘤内部は無血管性で血管新生は認められず、周囲血管の圧排像が認めら

れた。A-V shunt pooling 像などの所見は認められなかった (Fig. 4)。

以上の検査所見より石灰化多房性腎囊胞を疑ったが、悪性腫瘍を完全に否定することはできず、また後に述べるように、腫瘤の辺縁が全周性に石灰化し、内部にも石灰化を有するものは悪性である可能性が高いため、12月3日右腎摘出術を施行した。

手術所見：右傍腹直筋切開にて経腹膜的に後腹膜腔に入り、根治的右腎摘出術を施行した。手術時、腎と周囲との癒着はなく、剝離は容易であった。また肝、傍大動脈領域に腫瘤は触知されず、腎静脈腫瘍塞栓なども認められなかった。

病理所見：摘出された右腎は $9.5 \times 7 \times 4.5$ cm で、中央やや下極より腎線維性被膜により被われ、外方に突出する $3.9 \times 3.5 \times 3.5$ cm の腫瘤を認めた。剖面では、腫瘤は石灰化をともなう線維性被膜と同様に石灰化をともなう線維性中隔により隔壁形成をともなう多房性囊胞で、その内面は比較的平滑で乳頭状増殖は認められなかった。なお腔内に血性、一部コロイド状の内容物を満たしていたが、腎盂との交通は認められなかった。残存する腎組織には著変を認めず、腎盂の変形なども認められなかった (Fig. 5)。

組織学的に囊胞は、線維性組織により圧排され、間質の線維化をともなう腎間質の線維化とリンパ球浸潤をともなう腎組織と接して、硝子化をともなう線維性中隔により多房性となり、その内腔にはコロイド状の均一な弱エオジン好性の物質を充満し、出血をともなっていた。線維性中隔、被膜には少量の平滑筋と血管



Fig. 5

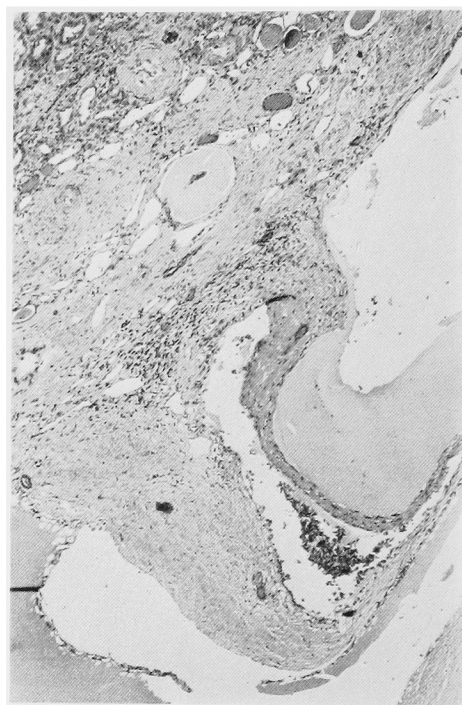


Fig. 6

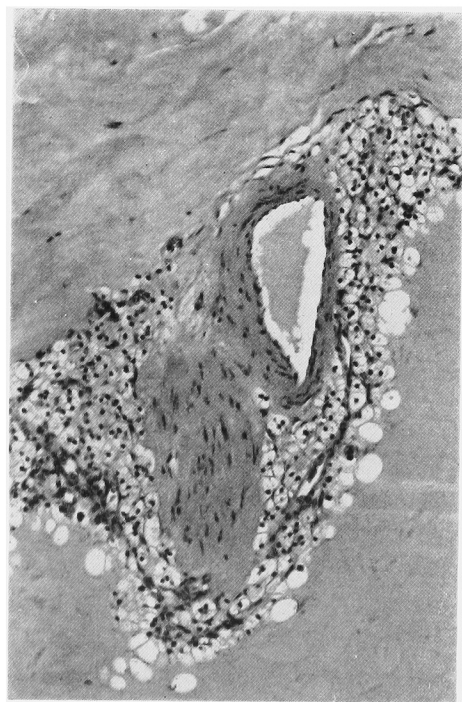


Fig. 7



Fig. 8

Table 1. Cases of multilocular cyst of the kidney reported in Japan after Tsushima's report

NO.	Authors	Year	Age	Sex	Site	Chief Complaints	Therapy	Complication
44	Yonezawa	1979	15M	♂	Lt.	Lt. Abd. tumor	Nephrectomy	
45	"	1979	13Y	♂	Rt.	Rt. Abd. tumor	"	
46	Kuroda	1983	11Y	♀	Lt.	Macrohematuria	"	
47	Tsubo	1984	11M	♀	Lt.	Lt. Abd. tumor	"	
48	Yamamoto	"	18Y	♀	Rt.	Macrohematuria	"	
49	Takahashi	"	9 M	♂	Rt.	Rt. Abd. tumor		
50	Yamabe	"	2 Y	♂	Lt.	Lt. Abd. pain		
51	Takeuchi	"	45Y	♂	Rt.	Rt. Abd. tumor	Nephrectomy irradiation	clear cell ca
52	Sasou	"	5 M	♀	Rt.	Rt. Abd. tumor	Nephrectomy	
53	Present Case	"	55Y	♀	Rt.	Rt. calcified tumor		

Table 2. Age Distribution

Age	Male	Female	Total
0 ~	11	4	15
5 ~	1	2	3
10 ~	1	4	5
20 ~	1	1	2
30 ~	1	1	2
40 ~	9	2	11
50 ~	2	5	7
60 ~	4	1	5
70 ~	0	3	3
Total	30	23	53

が認められ、尿細管の残存は腎組織に近接する部位に少量認めたが、糸球体は認めなかった (Fig. 6). 嚢胞内面は大部分は1層の平坦な上皮により被われるが、一部は明るく豊かな胞体を有し、hyperchromaticで円形の核を有する上皮が多層性に認められたが、核異型、核分裂像や浸潤傾向は認めなかった (Fig. 7). 線維性の嚢胞壁には硝子化と石灰化が著明に認められるが、骨形成は認められなかった (Fig. 8). なお、明らかな充実性の腎細胞癌または腎芽腫の病巣は認められなかった。以上より石灰化をともなう多房性腎嚢胞と診断した。

術後経過は良好で、術後第15病日で退院し、6カ月を経過した現在、再発、転移の徴候なく、元気に外来通院している。

考 察

多房性腎嚢胞の本邦での報告例は、安川¹⁾、津島²⁾らが1982年末までの43例を集計しており、以後の文献、学会報告などによる症例を集計すると、1984年末までに52例報告されており、自験例が53例目にあた

る^{3~10)} (Table 1). 年齢分布は Table 2 のごとく10歳以下と40歳以上に多い2峰性分布を示した。性別は男子30例、女子23例であり、患側は右31腎、左22腎であり、両側例は1例もなかった。また自験例のように石灰化をともなった症例は、本邦ではまだ報告がなく、自験例が初の報告と思われた。

多房性嚢胞の診断基準としては、Boggs and Kimmelstiel¹¹⁾の基準が確立したものとして広く用いられている。すなわち、(1)多房性である。(2)嚢胞の大部分が上皮組織で覆われている。(3)嚢胞と腎盂の交通がない。(4)残存組織には、圧迫、萎縮の像が認められる以外には正常の組織像が認められる。(5)嚢胞の隔壁には、成熟したネフロンが存在しない。以上5項目であり、自験例も彼らの基準を満たしていた。

病因論に関してはいまだ確立されておらず、先天説、後天説、腫瘍説の3つがあげられているが、最近では腫瘍説が有力であると思われる。すなわち Boggsら¹¹⁾は嚢胞隔壁中に metanephric blastoma 由来と思われる管腔構造を見出し、benign multilocular cystic nephroma と命名した。橋本ら¹²⁾も本邦例5歳以下の11例中6例に、隔壁中に embryonic tissue ないしは nephroblastomatous tissue がともなうと報告し、nephroblastomatous tissue が嚢胞形成に向ってしだいに成熟しつつある段階を思わせると述べている。また成人例ではこのような nephroblastomatous tissue を見た例は報告されていないが、腎腺癌の合併例が報告されており、小児例と成人例とでは発生病理などを同一に考えることのできない疾患単位である可能性もあると述べている。

いっぽう鈴木ら¹³⁾は、34歳女性で nephroblastomatous tissue を合併した1例を報告しており、腎芽腫との間の密接な関連性を示唆する症例であると述べ

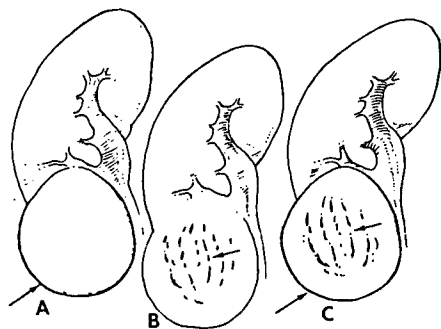


Fig. 9. Patterns of calcification. Peripheral (A), non-peripheral (eggshell) (B), and combined non-peripheral and peripheral (C).

ている。また Takeuchi ら⁹⁾は腎腺癌の合併例を報告し、その電顕所見から、嚢胞隔壁細胞の悪性への移行の可能性を推測している。自験例でも一部に淡明な胞体を有する細胞の増生巣が認められ、長期透析症例における ACDK (acquired cystic disease of the kidney) に合併した腎細胞癌の発生とも比較して、興味ある所見である¹⁰⁾

石灰化をともなう腎腫瘍としては、悪性腫瘍では腎腺癌がもっとも多く、移行上皮癌、ウィルムス腫瘍、腎転移などの石灰化も報告されている。良性腫瘍では、腺腫、血管筋脂肪腫などの報告がある。他の良性疾患では、腎嚢胞がもっとも多く、黄色肉芽腫性腎盂腎炎、膿瘍、腎動脈奇形、腎動脈瘤、腎包虫症、多発性嚢胞腎、血腫、多房性腎嚢胞などの報告がみられる¹⁵⁾。その頻度は Daniel ら¹⁶⁾によれば半数以上が悪性腫瘍で、なかでも腎細胞癌がもっとも多く、全体の52%を占めたと報告した。

一般に腎腺癌の10~20%、腎嚢胞の1~2%に石灰化が認められると報告されており、本邦での石灰化単純性腎嚢胞の報告は13例のみである¹⁷⁾。Daniel ら¹⁶⁾はX線上石灰化を、(A) Peripheral 型、(B) Non-peripheral 型、(C) Combined 型の3つの型に分類し (Fig. 9)、Peripheral 型の約20% Non-peripheral 型の約87%が悪性で、Combined 型の約70%が良性であったと報告した。いっぽう Sniderman ら¹⁸⁾は石灰化の型は診断の役にたらず、どんな型でも悪性を疑うべきであると述べている。さらに石灰化した腎癌は、血管造影で hypovascular ないしは avascular を示すものが多く、血管造影による診断は困難であると述べている。

石灰化発症機転については、入倉ら¹⁹⁾が、Salikand Abenshouse および Campbell を引用して説明しており、単純性嚢胞の石灰化は dystrophic calcification

に属し、嚢胞壁に2次的な変性がおきた場合におこりうると述べている。また Shiderman らは腎癌の石灰化は、出血、壊死、硝子化によるものであると述べている。自験例は、硝子化をともなう線維性被膜中隔に石灰化の認められることから、Sniderman ら¹⁸⁾のいう石灰化の機転が考えられる。

多房性嚢胞の治療法に関しては、現在では腫瘍説が支持されており、小児では腎芽腫との関連性が、成人では腎腺癌との合併例が報告されており¹²⁾、また unroofing のみでは再発したとの報告もあることから²⁰⁾、一般的には腎摘が安全と考えられている。しかし現在まで再発、転移により死亡した例は報告されておらず、本質的には良性疾患とされていることから考えると、嚢胞が比較的小範囲のもの、あるいは対側腎に機能障害を認めるものなどは腎部分切除術の適応と考える。

また自験例のように壁が石灰化しており、かつ内容液が血性であった腎腫瘍は40%が悪性であったとの報告があり²¹⁾、また Sniderman ら¹⁸⁾もすべての石灰化腫瘍は石灰化の型や血管造影像に関係なく悪性を疑うべきであると述べており、また超音波検査や CT でも腎癌が否定できなかったことなどから、自験例は腎摘もやむをえなかったと考えられた。

ま と め

1) 腹部超音波検査で偶然発見された石灰化をともなう多房性腎嚢胞の1例を報告した。

2) 本症例は多房性腎嚢胞としては本邦で53例目にあたり、石灰化をともなった多房性腎嚢胞としては本邦初の報告と思われた。

3) 治療については、多房性腎嚢胞は現在では腫瘍説が支持されており、また臨床的に悪性腫瘍を否定できず、かつ石灰化をともなった腎腫瘍は悪性腫瘍である可能性の高いことなどから、本症例は腎摘もやむをえないと考えられた。

文 献

- 1) 安川 修・高松正人・土居 淳・曾根正典・山際健司・大川順正：水腎杯症を合併した多房性腎嚢胞の1例。泌尿紀要 27：395~402, 1981
- 2) 津島知靖・荒巻謙二・池 紀征・浅野聡平・城仙泰一郎・松浦博夫：多房性腎嚢胞の1例。西日泌尿 46：663~667, 1984
- 3) Yonezawa S, Tokunaga M, Sato E, Arima E, Ohzono H, Kumagai N and Tokita N : Cystic partially differentiated nephroblastoma

- ma and multilocular cyst of the kidney. report of two cases of so-called multilocular cyst of the kidney. *Acta Path Jap* **29** : 471~478, 1979
- 4) 黒田憲行・上田豊史・百瀬俊郎・飯田則利：腎盂内発育を示した多房性腎嚢胞の1例。西日泌尿 **45** : 155~158, 1983
 - 5) 坪 俊輔・浅野嘉文・山田智二・大橋伸生・斯波光生・乳児 multilocular cyst の1例。日泌尿会誌 **75** : 150~151, 1984
 - 6) 山本利樹・篠村五雅・小池博之・湊 修嗣・大堀勉・多房性腎嚢胞の1例。日泌尿会誌 **75** : 865, 1984
 - 7) 高橋 等・上原 徹・渡辺 学：多房性腎嚢胞の1例。日泌尿会誌 **75** : 1517, 1984
 - 8) 山羽正儀・堀江正宣・磯具和俊：小児多房性腎嚢胞の1例。日泌尿会誌 **75** : 1711, 1984
 - 9) Takeuchi T, Tanaka T, Tokuyama H and Nishiura T: Multilocular cystic renal adenocarcinoma. A case report and review of the literature. *J of Surg Oncol* **25** : 136~140, 1984
 - 10) Sasou S, Monma N, Koike H and Ohority: Solitary multilocular cyst of the kidney with embryonic tissue in a child. *Acta Pathol, Jpn* **34** : 139~143, 1984
 - 11) Boggs LK and Kimmelstiel P Benign multilocular cystic nephroma: report of two cases of so-called multilocular cyst of the kidney. *J Urol* **76** : 536~541, 1956
 - 12) 橋本 博・岡村 廉晴・出村 孝義・中田 康信・坂下茂夫・高村 孝夫・黒田 一秀・早坂 和正：小児 Cystic nephroma の1例。西日泌尿 **43** : 1163~1168, 1981
 - 13) 鈴木良二・堀剛治郎・鈴木正章・猪股 出・古里征園・藍沢茂雄：多房性腎嚢胞に腎芽腫様成分を合併した1例。臨泌 **36** : 859~863, 1982
 - 14) 高原正信・原 繁・松村 勉・村上信乃・浅田学・松寄 理：慢性透析患者に発生した腎細胞癌の2例。泌尿紀要 **30** : 1239~1244, 1984
 - 15) 津島知靖・城仙泰一郎・浅野聰平・荒巻謙二・石戸則孝・松浦博夫：石灰化を伴った腎癌の1例。西日泌尿 **46** : 895~898, 1984
 - 16) Daniel WW Jr, Hartman GW, Witten DM, Farrow GM and Kelalis MD : Calcified renal masses. *Radiology* **103** : 503~508, 1972
 - 17) 菅 一徳・佐久間芳文・瀬尾喜久雄・久保 隆・大堀 勉・高山和夫：石灰化を伴った単純性腎嚢胞の1例。臨泌 **38** : 329~331, 1984
 - 18) Sniderman KW, Krieger JN, Seligson GR and Sos TA : The radiologic and clinical aspects of calcified hypernephroma. *Radiology* **131** : 31~35, 1979
 - 19) 入倉英雄・上原 徹・外川八州雄：著明な石灰化を呈した単純性腎嚢胞。西日泌尿 **39** : 958~963, 1979
 - 20) Geller RA, Pataki KI and Finegold RA Bilateral multilocular renal cysts with recurrence. *J Urol* **21** : 808~810, 1978
 - 21) Pozo JL Calcified cystic adenocarcinoma of the kidney. *J Royal Society Med* **74** : 920~921, 1981

(1985年4月30日受付)