

成人 Wilms 腫瘍の1例

金沢大学医学部泌尿器科学教室（主任：久住治男教授）

元井 勇・中嶋 和喜

新田 政博・山口 一洋

熊木 修・徳永 周二

島村 正喜・久住 治男

金沢大学医学部第2病理学教室（主任：太田五六教授）

野々村 昭 孝

WILMS' TUMOR IN AN ADULT PATIENT:
A CASE REPORTIsamu MOTOI, Kazuyoshi NAKAJIMA, Masahiro NITTA,
Kazuyo YAMAGUCHI, Osamu KUMAKI, Shuji TOKUNAGA,
Masayoshi SHIMAMURA and Haruo HISAZUMI*From the Department of Urology, School of Medicine, Kanazawa University**(Director: Prof. H. Hisazumi)*

Akitaka NONOMURA

*From the Second Department of Pathology, School of Medicine, Kanazawa University**(Director: Prof. G. Ota)*

A case of Wilms' tumor in an adult patient is presented. The tumor in adults is rather rare and has an unfavorable prognosis.

A 39-year-old man bruised his left flank while skiing in February, 1983. He noticed severe left flank pain. The pain subsided after a week of rest. However, he complained of left abdominal mass and dull pain again, and consulted our outpatient clinic on May 21, 1983. Left transperitoneal nephrectomy was performed under a diagnosis of left injured renal tumor. Histological diagnosis was nephroblastoma. A combined chemotherapy of actinomycin D (ACD) and vincristine (VCR) was started after operation. A total of 10 mg of ACD and 14 mg of VCR was administered by the end of 1983. In March 1984, however, a local recurrence and pulmonary metastases of the tumor were detected by CT and chest films. Local RF-hyperthermia combined with irradiation, alpha-interferon or chemotherapy using cisplatin and adriamycin was given. The patient died of profound cachexia in December, 1984 after gradual deterioration of general conditions.

Key words: Wilms' tumor, Adult type, Chemotherapy, Hyperthermia, Irradiation

緒 言

Wilms 腫瘍は小児悪性腫瘍の一つであるが、その発生頻度は比較的低い。成人においては、本疾患はさらに稀で、Wilms 腫瘍中成人例は2～9.2%とされて

いる¹⁻³⁾ われわれは最近39歳男性にみられた成人型 Wilms 腫瘍の1例を経験したので、若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者：39歳，男性，公務員

初診：1983年5月21日

主訴：左上腹部の腫瘍および疼痛

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：約1年前に軽度の糖尿病を指摘され，以来食餌療法を行なっている。

現病歴：1983年2月スキーで転倒し，左側腹部を打撲，同部に激痛を認めた。その後，温湿布およびマッサージにより，疼痛は約1週間で軽快した。5月20日，重い物を持った後，急に左上腹部痛および同部の膨隆を認めた。翌5月21日，某院外科を受診，左腎腫瘍を疑われ，即日当科を紹介され入院となった。

入院時現症：身長172 cm，体重59 kg，血圧150/100，頭頸部および胸部異常なし。左上腹部は膨隆し，圧痛，筋性防御あり。正中を1横指越え，臍下1横指までの，表面平滑で硬い腫瘍が触知された。

検査成績：検尿異常なし，赤沈1時間値59，2時間値87，血液所見；RBC $412 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，WBC $10,500/\text{mm}^3$ ，Hb 13.1 g/dl，HT 39.3%，Plts. $22.3 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，fibrinogen 641 mg/dl，血液生化学；TP 6.8 g/dl (alb. 56.5%， α_1 -glb. 6.3%， α_2 -glb. 11.4%， β -glb. 9.2%， γ -glb. 16.6%)，GOT 46 IU/L，GPT 10 IU/L，ALT 140 IU/L，ACP 4.6 IU/L，LDH 2,306 IU/L，CPK 25 IU/L， γ -GTP 39 IU/L，Na 139 mEq/L，K 4.0 mEq/L，Cl 99 mEq/L，Ca 4.5 mEq/L，P 2.0 mg/dl，BUN 13 mg/dl，Cr 1.4 mg/dl，UA 2.2 mg/dl，CRP 12.4 mg/dl，腎機能；24時間内因性クレアチニンクリアランス 58.3 ml/min。

X線検査所見：胸部X線；異常なし。KUB，DIP；KUBでは左腹部を占める大きな腫瘍陰影が認められ，これにより腸管ガス像は右下方へ圧排されていた。DIPで左腎盂像は描出されなかった (Fig. 1)。逆行性腎盂造影；逆行性腎盂造影では左腎々杯の拡張および下腎杯よりの造影剤溢流像がみられ，静脈との交通が認められた (Fig. 2)。腹部超音波検査；腹部超音波検査で，左腹部腫瘍は内部に索状構造および血腫を伴い，多彩な所見を有する左腎腫瘍と考えられた (Fig. 3)。また超音波監視下に吸引生検が試みられたが，腫瘍細胞は得られなかった。CT スキャン；逆行性腎盂造影直後のCT スキャンでは，腫瘍はほとんどが腎被膜下および被膜外の陳旧性の血腫であり，内部には一部新鮮な出血も認められた。しかし腫瘍の存在の有無は明らかではなかった (Fig. 4)。腎血管造影；左腎動脈造影では，腎被膜動脈の著明な伸展が



Fig. 1. An excretory urogram showing a large mass of the left abdomen without pyelogram.

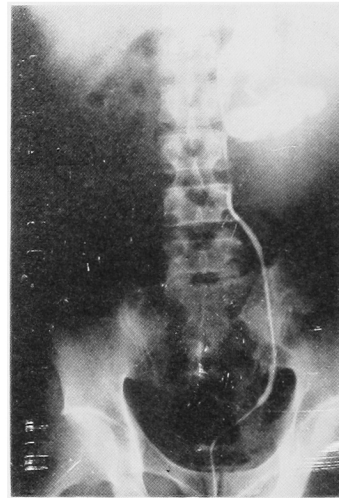


Fig. 2. A left retrograde pyelogram showing dilatation of calyces and extravasation from lower calyx.

みられ，腎動脈末梢部には一部に微細な新生血管が認められたが，腫瘍部分は avascular であった (Fig. 5)。

肝および骨スキャン：異常所見は認められなかった。

以上の所見より，本例は出血を伴った腎腫瘍である可能性が大であると考えられた。しかし，CT スキャンで腫瘍の存在が明らかでないこと，血管造影で腫瘍血管が認められず，微細な血管新生は炎症反応に伴うものとも説明可能であることより，腫瘍は腎破裂による陳旧性の血腫に，新たな出血が加わったものとも考

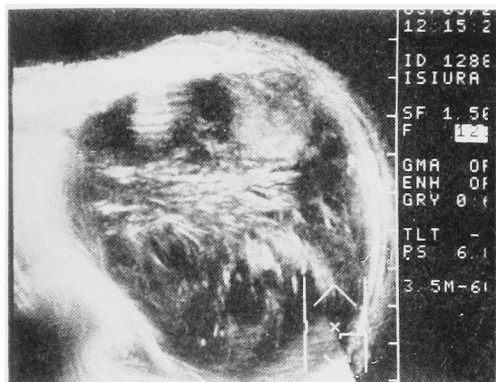


Fig. 3. Abdominal ultrasound showing a large solid mass with hematoma.

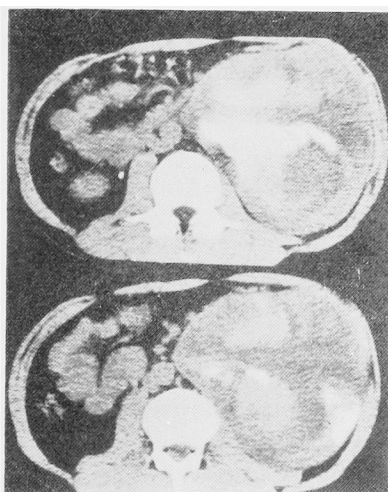


Fig. 4. CT-scan after retrograde pyelography showing a large hematoma around the kidney.

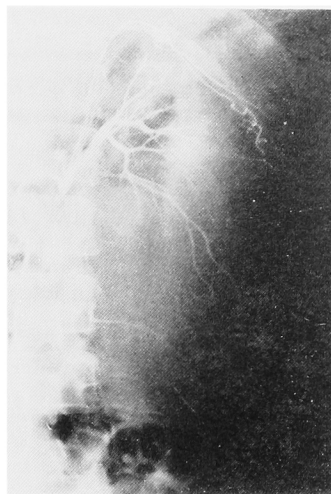


Fig. 5. Selective left renal angiogram showing an avascular mass surrounded by stretched capsular arteries.

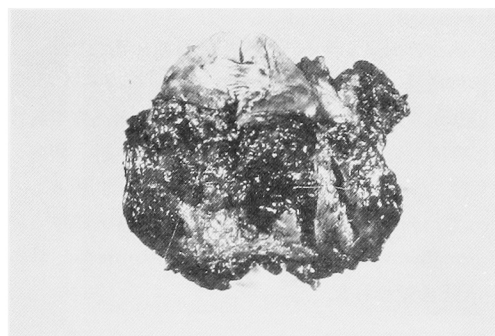


Fig. 6. Gross specimen (cut surface) showing grayish-white tumor with a large hematoma arising from a lower half of the left kidney.

えられた。

手術所見 1983年6月6日、GOF 全麻下に左経胸腹的腎摘除術および脾摘除術が行なわれた。腫瘍は下行結腸との癒着が著明であり、脾ともかなりの癒着が認められた。摘除された腫瘍は 1,115 g、断面では上部に腎実質が存在し、他の部はほとんどが器質化した血腫からなっており、内部には比較的新鮮な凝血塊を有していた。また一部には灰白色ミルクゼリー様の腫瘍組織と思われる部分が認められた (Fig. 6)。

病理組織学的所見 同部の組織学的所見では、紡錘形から楕円形を有する腫瘍細胞が充実に増殖し、一部では細胞が立方状を呈して上皮様の配列を示していた。特に横紋筋や軟骨組織などへの分化は認められず、PAS 陰性であった。鍍銀染色では鍍銀線維の産生に乏しく、これらの所見より nephroblastoma, diffuse nephroblastic subtype と診断された (Fig.

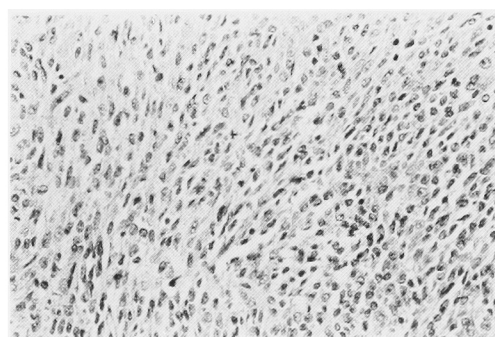


Fig. 7. Photomicrograph showing blastomatous cells associated with focal epitheloid differentiation.

7).

術後経過：6月27日より national Wilms' tumor study の第3次の regimen EE⁴⁾ に準じて actinomycin-

cin D 0.5 mg/day 5日間連続投与を計2コース 5.0 mg 投与, vincristine 1 mg/week を10回, 計 10 mg を投与し, 8月13日退院した。さらに13週目および26週目に, それぞれ actinomycin D 0.5 mg/day 5日間, vincristine 2 mg を追加投与した。actinomycin D および vincristine の総投与量はそれぞれ, 10 および 14 mg となった。

ところが1984年3月22日, CT スキャンにて左腹部に腫瘍の再発が認められ, 4月16日再入院となった。入院時胸部X線写真では左中肺野に 35×60 mm の腫瘍陰影が認められた。4月24日より actinomycin D, vincristine による化学療法を行なった。また5月15日より7月6日までは 8 MHz-RF による温熱療法を12回およびライナック 62.4 Gy の照射を行ない, この間腫瘍は縮小傾向を示し, dysproteinemia の改善が認められた。しかし8月に入り, 腫瘍は再び増大傾向となった。α-インターフェロン, CDDP および adriamycin 投与にも反応せず, 9月より腹水が出現, 消化管出血も伴い, 1984年12月8日死亡した。

剖検所見: 左下腹部腹腔内に 16.0×19.0×11.0 cm の腫瘍がみられた。その腫瘍は出血壊死が高度で胃後壁に穿通していた。転移は後腹膜, 腹膜, 肝, 両肺, 横隔膜, 左胸膜, 腹部大動脈周囲および腸間膜リンパ節に認められた。病理組織学的所見は手術標本と同様, nephro-blastoma, diffuse nephroblastic sub-type と診断された。

考 察

Wilms 腫瘍の小児悪性腫瘍における頻度は神経芽細胞腫に次いで多いが, 成人においては稀である。Wilms 腫瘍のうちで成人例が占める割合は Klapproth ら¹⁾は4.4%, Jagasia ら²⁾は9.2%, Jereb ら³⁾は2%と報告している。

初発症状は小児例では大部分が腹部腫瘍であるのに対し, 成人例では疼痛あるいは血尿が多い。Kilton ら⁵⁾の集計では疼痛が66%, 腹部腫瘍が48%, 血尿が36%とされている。術前診断は一般に困難である。Wong ら⁶⁾は吸引生検が Wilms 腫瘍の診断に有用であると述べている。本症例においても, 術前に超音波監視下に吸引生検が試みられたが, 腫瘍細胞は得られなかった。本症例のように腫瘍の大部分が凝血塊で占められ, 超音波検査によって腫瘍部分が判然としない場合は, くり返し吸引生検を試みる必要がある。

治療に関しては, 本疾患の成人例が少ないことも一因して確立されたものはない。最近の報告の多くは, 小児例を対象とした national Wilms' tumor study

の治療計画に準じて, 外科療法, 放射線療法あるいは化学療法が行なわれている⁵⁾。小児例に比較し予後は不良とされており, Livermore⁷⁾ は105例中5年生存例は5例(4.8%)にすぎなかったとしている。これに対し Kilton ら⁵⁾の最近の集計では35例中完全寛解例は44%, 5年生存例は8例(22.5%)であったとしている。しかし病期分類の group III, IV に限れば長期生存例は11例中2例であり, また全症例のうち14例は1年以内に死亡している。Adolphs ら⁸⁾は成人例の場合はまず根治的腎摘除術を行ない, その後は可能な限り強力な化学療法を行なうべきであると述べている。われわれの症例は初診時に group III と診断され, 初期の治療としては放射線療法を加えた, より強力な化学療法を行なうべきであったとも考えられるが, 患者の早期復職の希望が強く, 比較的短期間の入院後, 外来で投与可能な regimen を採用した。再発が認められて以後, 化学療法に放射線療法, 温熱療法を加えた集学的治療を行なったが, 期待した効果は得られず, 不幸な転帰となった。本症の治療の困難さが痛感させられる症例であった。

結 語

39歳男性にみられた Wilms 腫瘍の1例について, 若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の一部は第31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) Klapproth H: Wilms' tumor. A report of 45 cases and an analysis of 1351 cases reported in the world literature. *J Urol* **81**: 633~648, 1959
- 2) Jagasia KH and Thurman WG: Wilms' tumor in an adult. *Arch Intern Med* **115**: 322~325, 1965
- 3) Jereb B and Eklund G: Factor influencing the cure rate in nephroblastoma. A review of 355 cases. *Acta Rad (Ther)* **12**: 84~106, 1973
- 4) 別所文雄: Wilms 腫瘍の最近の治療. *臨泌* **36**: 701~715, 1982
- 5) Kilton L, Matthews MJ and Cohen MH: Adult Wilms' tumor: A report of prolonged survival and review of literature. *J Urol* **124**: 1~5, 1980
- 6) Wong JY and Zaharopoulos P: Cytologic

- features on needle aspiration of Wilms' tumor in an adult. *Acta Cytol* **27**: 69~72, 1983
- 7) Livermore GR: Wilms' tumor in the adult: Report of a ten year cure. *J Urol* **70**: 141~145, 1953
- 8) Adolphs HD, Knöpfle G, Vogel J and Hartlapp J: Wilms tumor in the adolescent and adult. *Eur Urol* **9**: 281~287, 1983

(1986年1月27日受付)