

腎細胞癌の転移と鑑別を要したデスモイド腫瘍の1例

矢野 哲弘, 大豆本 圭, 尾崎 啓介, 佐々木雄太郎

楠原 義人, 布川 朋也, 山口 邦久, 山本 恭代

高橋 正幸, 金山 博臣

徳島大学大学院医歯薬学研究部泌尿器科学分野

A CASE OF DESMOID TUMOR INITIALLY DIAGNOSED
AS A METASTASIS FROM RENAL CELL CARCINOMA
—A CASE REPORT—Tetsuhiro YANO, Kei DAIZUMOTO, Keisuke OZAKI, Yutaro SASAKI,
Yoshito KUSUHARA, Tomoya FUKAWA, Kunihisa YAMAGUCHI, Yasuyo YAMAMOTO,
Masayuki TAKAHASHI and Hiro-omi KANAYAMA*The Department of Urology, Institute of Biomedical Sciences, Tokushima University Graduate School*

We report a case of desmoid tumor that was initially diagnosed as metastasis from renal cell carcinoma. A follow-up computed tomographic (CT) scan after nephrectomy for renal cell carcinoma in a 64-year-old man revealed a right retroperitoneal tumor 3.5 cm in diameter. Though the CT density of the tumor was similar to that of muscles, we first suspected metastasis from renal cell carcinoma or other cancer because the tumor growth was relatively fast. We resected the tumor. The pathological diagnosis was desmoid type fibromatosis. We also review six cases of desmoid tumors after nephrectomy for renal cell carcinoma reported in Japan. Careful followup is required for the patients with desmoid tumors because of frequent recurrence.

(Hinyokika Kiyo 66 : 383-386, 2020 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_66_11_383)

Key words : Desmoid, Retroperitoneal tumor

緒 言

デスモイド腫瘍（以下、デスモイド）は比較的稀な疾患であり、病理組織学的には良性腫瘍であるが¹⁾、その臨床像は強い局所浸潤を呈する。治療の第一選択として手術が考慮される²⁾が、高い再発率を有する³⁾。またその浸潤性により、死に至る例が報告されている⁴⁾。今回われわれは、腎癌術後再発と鑑別を要したデスモイドの1例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 64歳, 男性

既往歴 : 高血圧, 左腎細胞癌 (2018年手術), 甲状腺乳頭癌 (2015年手術), 右上葉肺癌 (2018年手術)

主 訴 : 右水腎症精査

現病歴 : 2017年12月 甲状腺乳頭癌術後の経過観察中に右肺上葉のスリガラス影を指摘され、精査目的のPET-CTで左腎腫瘍を認めた。翌年2月に左腎腫瘍に対し、腹腔鏡下左腎摘除術（病理組織は淡明細胞型腎細胞癌 ; Clear cell renal cell carcinoma, Fuhrman grade G2, INFa, v0, ly0 : pT1a), 同年6月に右上葉肺癌に対し、右上葉肺部分切除（肺腺癌 ; Adenocarcinoma, 断端陰性）を施行した。同年12月に、経過観

察のためのCTで右水腎症および右後腹膜腫瘍を認め、腎癌の転移を疑い転移巣摘除術を目的に2019年1月に当科入院した。

家族歴 : 父 胃癌, 母 甲状腺癌・大腸癌

生活歴 : 飲酒 3単位/day, 喫煙 30本/day×35年間, 職業 薬剤師

入院時現症 : 身長 173 cm, 体重 68.1 kg. 頭部に黒色の疣贅あり。胸部に小手術痕, 腹部に腎摘除術時の手術創あり。他に特記すべき所見なし。

検査所見 : 血液検査, 尿検査に特記すべき事項なし (Cr 0.91 mg/dl)。

画像所見 : 腎癌術後6カ月時のCTで、右尿管と総腸骨動脈の交叉部よりやや頭側の後腹膜に11 mm大の腫瘍を認め、術後10カ月時のCTで35 mm大まで増大し、右尿管を圧迫し右水腎水尿管を生じていた (Fig. 1a~d)。

入院後経過 : 片腎のため水腎症に伴う腎不全の懸念、複数癌の既往があり急速に増大していたため、転移の可能性を考慮し、2019年1月に開腹後腹膜腫瘍摘除術を施行した。下腹部正中切開し、経腹膜的に腹腔内へ到達した。腹腔内には異常なく、腫瘍は腹膜下に硬く触知され可動性が悪かったために、周囲との癒着が疑われた。後腹膜を切開すると、腫瘍は総腸骨動脈

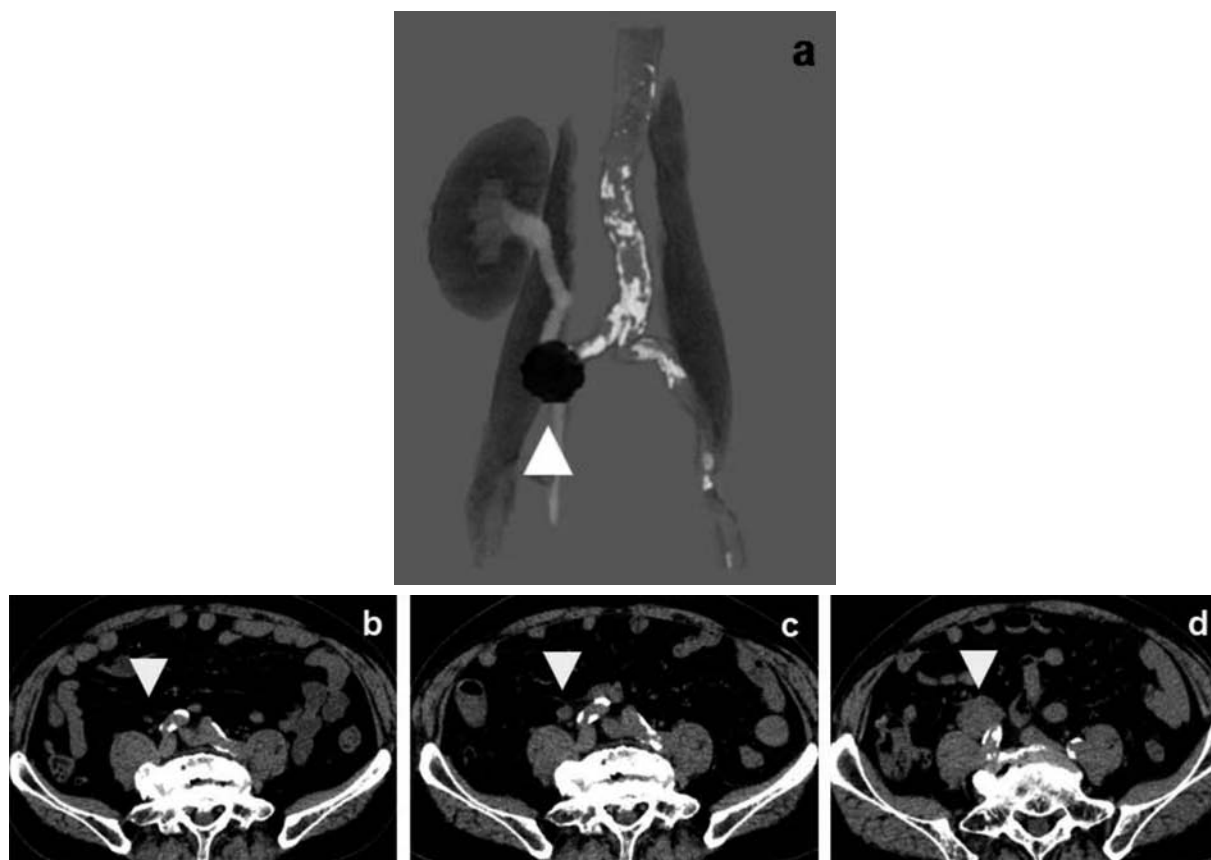


Fig. 1. Non-contrast enhanced CT shows a tumor lies slightly above the intersection of the right common iliac artery and right ureter, which is structured on a computer by Ziostation (a). CT image taken preoperatively (b), at 6 months (c) and at 10 months (d) after operation. The tumor size was increasing over time (b-d).

や腸腰筋との癒着が見られたが、周囲との剥離は可能で、腫瘍腹側に腹膜をつけたまま背側は尿管と合併切除し摘出した。尿管は端々吻合し、切開した腹膜を閉鎖し手術終了した。手術時間は3時間42分、出血量は55 mlであった。術後経過は良好で術後8日目に退院した。術後1年経過した現在、右水腎症は消失し、明らかな再発は見られていない。

摘出標本：標本重量は32 gで表面は硬く弾力があり、断面は白色の繊維状充実性腫瘍だった (Fig. 2)。

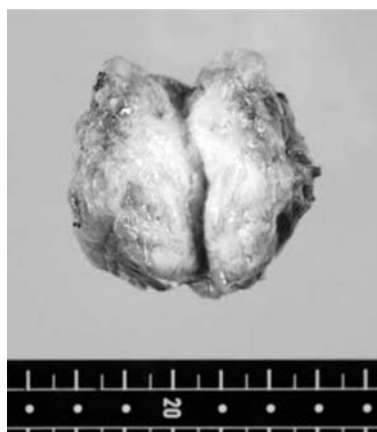


Fig. 2. Gross findings of the cross section of the tumor.

病理所見：HE染色では、紡錘形の核を有する細胞と繊維、血管の増殖を認め、少数の核分裂像が散見されたが異型核分裂像は認めなかった (Fig. 3a)。免疫染色では紡錘形細胞の核は β カテニン陽性のものが多く (Fig. 3b)、一部にSMA, desminの陽性像も認めた。CD34, S-100蛋白は陰性でKi-67 labeling indexは約2%の陽性であった。上記所見より、デスモイド型繊維腫と診断した。

考 察

デスモイド腫瘍は、バンドや腱の意味に由来し、全新生物の0.03%と稀な疾患である¹⁾。15歳から60歳までに多く、やや女性に多い。デスモイドは発生様式によって2つのグループに分けられ、家族性腺腫性ポリポーシス (以下、FAP) に合併するものと散発性ものがあり、散発性ものには腹腔内や腹腔外に孤発するものと手術などに伴って同部位へ発生するものがある。組織学的には良性で遠隔転移する特徴はないが、局所的に浸潤し隣接する臓器の破壊により死に至る可能性もあり、完全切除後も高い再発率を有する³⁾。デスモイド腫瘍の5~15%がFAPとの関連を指摘されており⁵⁾、APC遺伝子の変異により、 β カテニンの核内への陽性率上昇を認める。またその他にも高エス

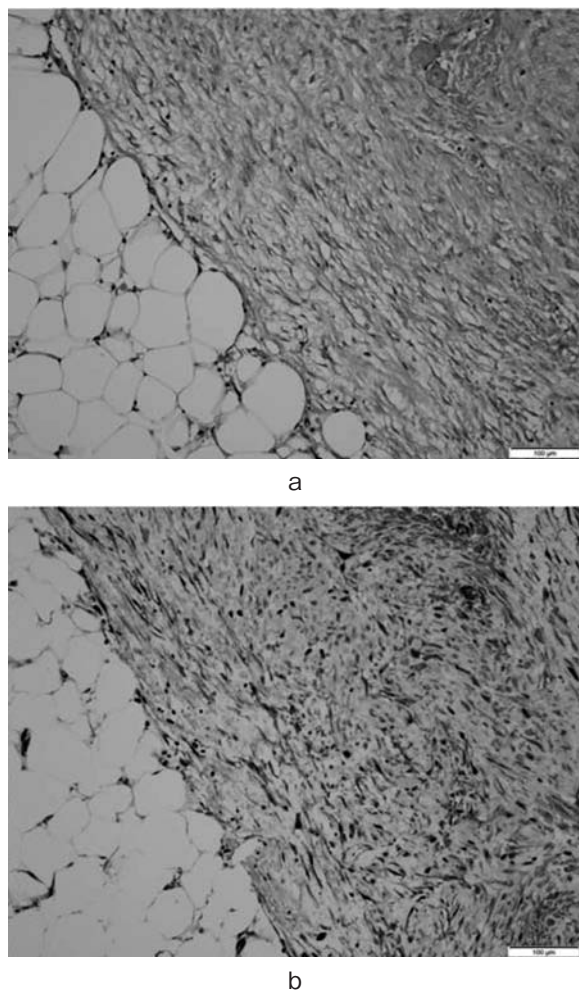


Fig. 3. Hematoxyline-eosin stain showed spindle-shaped fibroblasts (a). Immunohistochemical staining showed that tumor cells were positive for β -catenin (b).

トロゲン状態との関連や、外傷や手術によるエピソードの関与も指摘されている。画像診断の所見として、CT では筋肉などの軟部組織と同程度のコントラストを有し、造影剤や FDG/PET の集積パターンも様々である。局所浸潤の有無の判定には MRI 検査が有用

と考えられ、T1 強調画像で等～低信号、T2 強調画像で低～高信号の混在の特徴を有する。病理組織所見では、異型に乏しく紡錘形の核を有する線維芽細胞の増生と膠原繊維を認め、免疫染色は多くに β カテニンの陽性像を認める。

後腹膜腫瘍の鑑別として、肉腫や繊維腫などの軟部腫瘍、神経原性腫瘍やリンパ腫などが挙げられ、成人では脂肪肉腫、平滑筋肉腫、悪性繊維性組織球症などの間葉系細胞由来の悪性腫瘍が多いとされている⁶⁾。本症例では甲状腺癌、肺癌、腎癌の術後に後腹膜腫瘍の発生を認め、腫瘍の進行速度も比較的早く悪性疾患の可能性が考えられた。肺癌および甲状腺癌の後腹膜リンパ節への転移の報告は少なく^{7,8)}、腎癌の T1a 術後再発の頻度は同側腎で約 5%、対側腎で約 1%程度と報告されており^{9,10)}、対側の尿管付近への転移の報告は認めなかったが、急速な腫瘍の進行による尿管圧迫のために残腎へ水腎症を生じており、可及的速やかな対応が求められたために手術による治療を選択した。デスモイド腫瘍は従来より広範切除による治療が推奨されてきたが、近年の研究結果には切除縁と再発率との間には有意な相関は見られないという報告もある。また経過観察によって自然退縮や発育停止を認める例もあり、治療を受けた者と経過観察された群の 5 年間の無増悪生存期間に有意差はないという報告も認めるため、デスモイド腫瘍への積極的治療介入が生存率を改善させるか否かは未だ明らかではない¹¹⁾。腫瘍の急速な増大など経過観察のみでは管理が困難な例において、治療の第一として外科的切除が選択されるが、切除断端が陰性の患者においても 16～39% の高い再発率が報告されていることから、再発には注意深い経過観察が必要である。再発性のデスモイドに対しても、外科的切除が選択肢としてあがるが、術後の再発リスクの上昇により薬物治療や放射線治療を含めた集学的治療が必要な場合がある。薬物療法として、ドキソルピシン¹²⁾やメソトレキセート、ビンブラスチン¹³⁾に

Table 1. Summary of 6 cases of desmoid tumor after renal cancer surgery

著者	年齢	性別	腎癌術式	腎癌術後 デスモイド 発生までの 期間	デスモイド 発生部位	腫瘍径	FAP との 関連	他癌の既往	デスモイド 再発の有無 (観察期間)
大竹ら ¹⁴⁾	71	男	開腹右腎摘除術	29カ月	右側腹壁	18×12×16 mm	無	無	無(13カ月)
原ら ¹⁵⁾	64	男	腹腔鏡下右腎部分切除術	18カ月	十二指腸近傍 腹腔内	25 mm	無	無	無(30カ月)
藤田ら ¹⁶⁾	53	男	右腎摘除術	24カ月	右側腹壁	90×40×30 mm	無	無	無(24カ月)
田中ら ¹⁷⁾	44	男	右腎摘除術	18カ月	左手肋部腹壁	70×40 mm	不詳	無	有(17, 21カ月)
八木ら ¹⁸⁾	80	女	右腎部分切除術	36カ月	上行結腸近傍 腹腔内	40 mm	無	子宮体癌	無(13カ月)
岩田ら ¹⁹⁾	62	男	右腎摘除術	27カ月	右小腸近傍 腹腔内	50 mm	無	大腸癌	不詳
自験例	64	男	腹腔鏡下左腎摘除術	6カ月	右尿管近傍	40 mm	無	甲状腺癌、 肺癌	無(12カ月)

より有効性が示された報告も認める。

本邦において、腎癌の術後にデスマイド腫瘍を生じた例はわれわれの調べた限りでは6例報告があり、自験例は7例目であった (Table 1)¹⁴⁻¹⁹⁾。年齢の中央値は61歳、術後報告までの期間中央値は約2年1カ月であった。過去の報告ではすべてが手術を行った部位への発生であるが、自験例でのデスマイド発生は、腎癌術後約10カ月に手術対側の後腹膜に生じたことから、腎摘除術の間接的な影響があったかもしれないが、直接的な影響とは考えにくかった。手術とデスマイド腫瘍に関する報告は数多く存在し、治療ごとに比較した研究においても手術による腫瘍の局所制御率は経過観察や放射線治療群よりも低かった報告もあり²⁰⁾、手術による侵襲とデスマイド腫瘍発生の因果関係は否定できない。また、本症例では大腸内視鏡でポリープや悪性腫瘍はなく、FAPとの関連はなかったが、複数の癌の既往や家族歴を有していることより何らかの遺伝子異常が背景にあるのかもしれない。FAPにデスマイドを合併した例においては致死的な状態となりえるため、デスマイド腫瘍とFAPの関連については常に念頭に置いておく必要がある。

結 語

今回われわれは、腎癌の転移と鑑別を要するデスマイド腫瘍の1例を経験した。デスマイド腫瘍は高い再発率を有するため、治療後も慎重な経過観察が望まれる。

謝 辞

本論文を作成するにあたり、ご指導いただきました先生方を初め画像提供にご協力いただきました放射線技師 湯浅さん、病理部 上原先生に深く感謝しここに礼申し上げます。

文 献

- 1) Reitamo JJ, Häyry P, Nykyri E, et al.: The desmoid tumor. I. Incidence, sex-, age- and anatomical distribution in the finnish population. *Am J Clin Pathol* **77**: 665-673, 1982
- 2) Ballo MT, Zagars GK, Pollack A, et al.: Desmoid tumor: prognostic factors and outcome after surgery, radiation therapy, or combined surgery and radiation therapy. *J Clin Oncol* **17**: 158-167, 1999
- 3) Huang K, Fu H, Shi YQ, et al.: Prognostic factors for extra-abdominal and abdominal wall desmoids: a 20-year experience at a single institution. *J Surg Oncol* **100**: 563-569, 2009
- 4) Arvanitis ML, Jagelman DG, Fazio VW, et al.: Mortality in patients with familial adenomatous polyposis. *Dis Colon Rectum* **33**: 639-642, 1990
- 5) Koskenvuo L, Peltomäki P, Renkonen-Sinisalo L, et al.: Desmoid tumor patients carry an elevated risk of familial adenomatous polyposis. *J Surg Oncol* **113**: 209-212, 2016
- 6) 大杉 圭, 谷本伸弘: 泌尿器・生殖器腫瘍. 臨画像 **26**: 163-200, 2010
- 7) 杉谷 巖, 川端一嘉, 鎌田信悦, ほか: 甲状腺乳頭癌における遠隔転移. 頭頸部腫瘍 **30**: 78-84, 2004
- 8) 石垣武男, 河野通雄, 水谷雅子, ほか: 肺癌の腹部臓器転移のCT診断. 肺癌 **24**: 229-238, 1984
- 9) 富田善彦: 腎温存手術後の腎再発の臨床的検討. 泌尿器外科 **16**: 409-412, 2003
- 10) Fujii Y, Ikeda M, Kurosawa K, et al.: Different clinicopathological features between patients who developed early and late recurrence following surgery for renal cell carcinoma. *Int J Clin Oncol* **20**: 802-807, 2015
- 11) Martínez Trufero J, Pajares Bernad I, Torres Ramón I, et al.: Desmoid-type fibromatosis: who, when, and how to treat. *Curr Treat Options Oncol* **18**: 29, 2017
- 12) Baliski CR, Temple WJ, Arthur K, et al.: Desmoid tumors: a novel approach for local control. *J Surg Oncol* **80**: 96-99, 2002
- 13) Azzarelli A, Gronchi A, Bertulli R, et al.: Low-dose chemotherapy with methotrexate and vinblastine for patients with advanced aggressive fibromatosis. *Cancer* **92**: 1259-1264, 2001
- 14) 大竹慎二, 南村和宏, 藤川 敦, ほか: 腎摘除術後創部近傍に発生した、再発腎細胞癌との鑑別を要した Desmoid 腫瘍の1例. 泌尿紀要 **61**: 353-357, 2015
- 15) Hara R, Fujii T, Ohira S, et al.: Intra-abdominal desmoid tumor mimicking local recurrence of renal cell carcinoma after laparoscopic partial nephrectomy. *Urol Case Rep* **24**: 100865, 2019
- 16) Fujita K, Sugao H, Itoh Y, et al.: Desmoid tumor in a scar from radical nephrectomy for renal cancer. *Int J Urol* **10**: 274-275, 2003
- 17) 田中壽一, 三好新一郎, 藤井義敬, ほか: 切除範囲の評価にMRIが有効であった左胸腹壁デスマイド腫瘍の1手術例. 日呼外会誌 **13**: 58-62, 1999
- 18) 八木朝彦, 稲田 涼, 永坂岳司, ほか: 腹腔鏡下に切除した腹腔内デスマイド腫瘍の1例. 日外科系連会誌 **40**: 111-115, 2015
- 19) 岩田 崇, 登内 仁, 毛利靖彦, ほか: 大腸癌・腎細胞癌同時手術後に発症したデスマイド腫瘍の1例. 中部外科学会総会号 **41**: 42, 2005
- 20) Seinen JM, Niebling MG, Bastiaannet E, et al.: Four different treatment strategies in aggressive fibromatosis: a systematic review. *Clin Transl Radiat Oncol* **12**: 1-7, 2018

(Received on March 31, 2020)
(Accepted on July 14, 2020)