

下大静脈腫瘍塞栓を伴った腎血管筋脂肪腫の1例

福岡赤十字病院泌尿器科

秋 武 正 和*・福地源司郎・山 田 茂 智・清島圭二郎

(受付日: 2021 年 9 月 30 日, 受理日: 2022 年 4 月 4 日)

抄録:

症例は 55 歳, 女性。2014 年に検診で右腎血管筋脂肪腫を指摘され当科紹介受診。最大径 17 mm の右腎血管筋脂肪腫を確認し 1 年毎に CT で経過観察の方針となっていたがその後再来はなかった。2018 年に検診で右腎腫瘍を再指摘され当科紹介となった。CT で下大静脈塞栓を伴う最大径 65 mm の右腎血管筋脂肪腫を認めた。術前に一時的な下大静脈フィルターを挿入し開放右腎摘除術および腫瘍塞栓摘出術を行った。腫瘍は周囲との癒着はなく下大静脈切開を行い右腎および腫瘍塞栓を一塊に摘出した。本症例は 4 年の経過で 17 mm の右腎血管筋脂肪腫が 65 mm に増大し下大静脈まで到達する腫瘍塞栓が出現した。腎血管筋脂肪腫における定期経過観察の重要性が再認識された。(西日泌尿, 84: 558-561, 2022)

キーワード: 腎血管筋脂肪腫, 腫瘍塞栓

緒 言

腎血管筋脂肪腫は泌尿器科領域においてしばしばみられる良性腫瘍であるが, 腎静脈塞栓を合併することは稀である。今回我々は初診から 4 年の経過で右腎血管筋脂肪腫が下大静脈内に進展した症例に対して一時的な下大静脈フィルターを留置し, 右腎摘除術および腫瘍塞栓摘出術を施行したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 55 歳, 女性

主訴 検診で右腎腫瘍指摘

既往歴 虫垂炎術後, 高血圧, 帝王切開, 更年期障害

内服薬 エストリオール

現病歴 2014 年に検診で右腎腫瘍を指摘され当科紹介受診。腹部超音波, CT 検査で最大径 17 mm の右腎血管筋脂肪腫と診断した (Fig. 1)。自覚症状のない小径腫瘍であり 1 年に 1 回の画像検査の方針としたが, その後も無症状であったため患者の通院はなかった。

2018 年に検診で再度右腎腫瘍を指摘され当科紹介となった。

腹部超音波および CT 検査を施行し, 右腎血管筋脂肪腫は 65 mm 大に増大し, また下大静脈合流部まで進展

した腫瘍塞栓を認めた。

再診時現症 身長 152 cm, 体重 39 kg, BMI 16.92。臍下に正中切開創 (帝王切開), 右下腹部に切開創 (虫垂炎) を認めた。

再診時検査所見 血算 WBC 4400/μL, RBC 493 × 10⁴/μL, Hb 13.6 g/dL, Plt 15.1 × 10⁴/μL。生化学

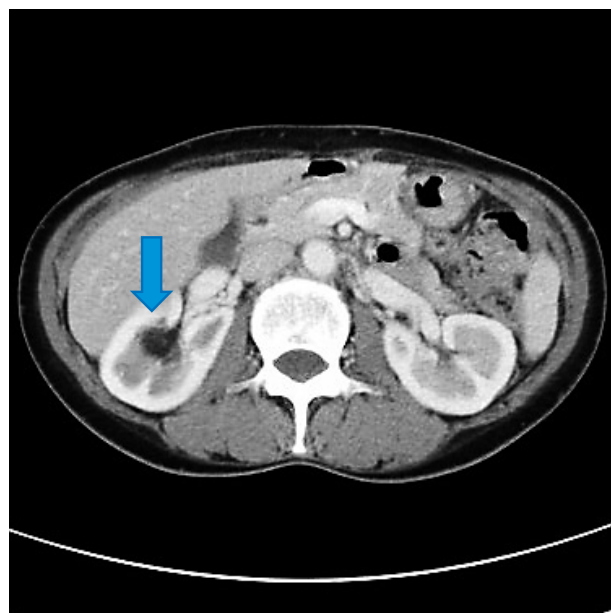


Fig. 1 Abdominal computed tomography shows angiomyolipoma of right kidney, measuring 17 mm at maximum diameter (arrow).

* 〒 815-8555 福岡県福岡市南区大楠 3 丁目 1 番 1 号
TEL 092-521-1211, FAX 092-522-3066
E-mail: m-akitake@fukuoka-med.jrc.or.jp

T-Bil 1.16 mg/dL, AST 19 U/L, ALT 20 U/L, LDH 144 U/L, ALP 159 U/L, γ -GTP 14 U/L, BUN 9.2 mg/dL, Cre 0.57 mg/dL, 尿酸 3.6 mg/dL, Na 141 mEq/L, K 3.76 mEq/L, Cl 104.9 mEq/L, CRP 0.01 mg/dL。尿検査 蛋白 (-), 糖 (-), 白血球 1 未満/HPF, 赤血球 1 未満/HPF。

腹部超音波検査 腫瘍塞栓が下大静脈内近くまで進展し、血流に伴い腫瘍栓先端が動くのが確認された。

造影 CT 右腎中央に最大径 65 mm の腫瘍を認め、腫瘍の内部は脂肪濃度を示していた。外方への突出はなく完全埋没型の腫瘍であった。腫瘍塞栓先端はくびれた形を呈しており下大静脈合流部まで進展していた (Fig. 2A, 2B)。

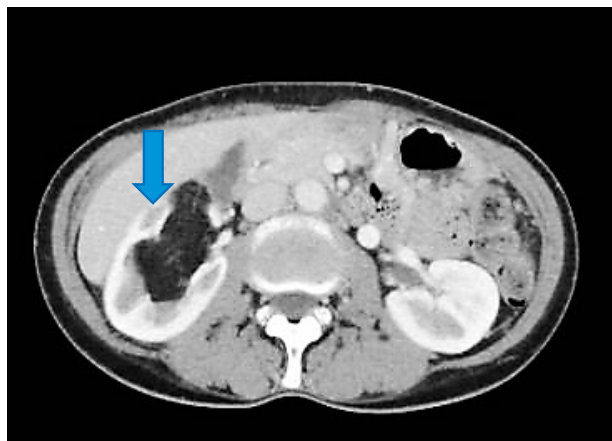


Fig. 2A Abdominal computed tomography (CT) 4 years after the first examination shows angiomyolipoma of the right kidney, which had grown to 65 mm at maximum diameter (arrow).

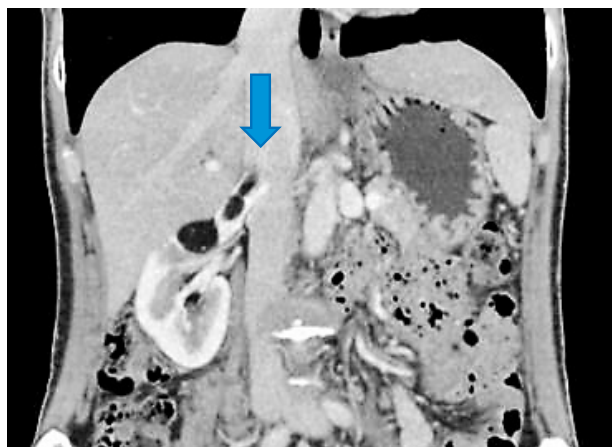


Fig. 2B CT reveals tumor thrombus extending into the inferior vena cava (arrow).

治療経過

下大静脈腫瘍塞栓を伴う右腎血管筋脂肪腫と診断し開放手術による右腎摘除術、腫瘍塞栓摘除術の方針とした。腹部超音波検査では腫瘍塞栓の先端が血流に伴い動くのが確認され、術中操作で腫瘍塞栓が遊離し肺塞栓に至る危険性が十分に考えられたため、肺塞栓防止のため術当日に右内頸静脈より一時的な下大静脈フィルターを留置した。

剣状突起から臍下 4 cm までの腹部正中切開で開腹し、下大静脈と大動脈の間で 2 本の右腎動脈を結紮切断した。その後右腎周囲の剥離を進め右腎静脈を露出した。右腎静脈内腔に黄色の腫瘍塞栓を透視することが出来た。術中超音波検査でも腫瘍塞栓の先端は下大静脈吻合部まで進展しており、腫瘍塞栓の先端を右腎静脈まで押し戻して腎静脈を結紮切断することは困難であった。下大静脈の右腎静脈起始部をサイドクランプし、下大静脈壁を切開して腫瘍塞栓を損傷することなく右腎と一塊に摘出した。腫瘍塞栓の静脈壁との癒着は認めなかった。手術時間は 2 時間 28 分、出血量は 35 ml であった。術後 3 日目に CT を撮影し下大静脈フィルターに腫瘍が付着していないことを確認して抜去した。経過良好にて術後 11 日目に退院となった。術後再発無く 1 年間で経過観察を終了した。

摘除標本

摘出重量 159 g。術前画像所見の通り腫瘍塞栓の先端はくびれた形状となっていた (Fig. 3)。

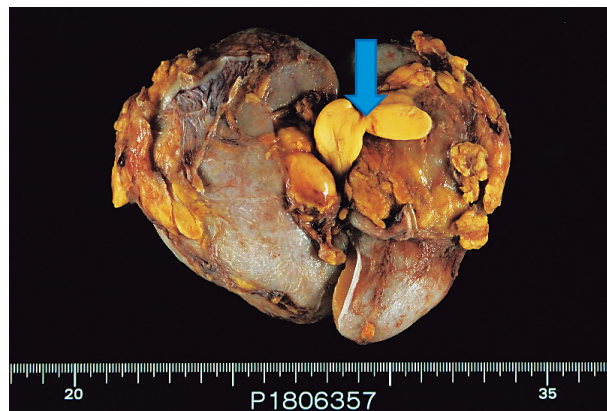


Fig. 3 Macroscopic findings of the renal kidney. Arrow shows tumor thrombus that extending into the inferior vena cava.

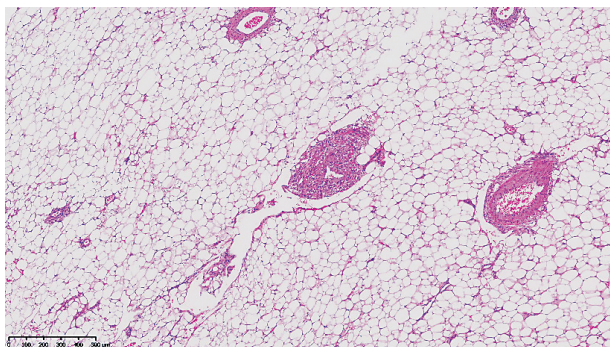


Fig. 4 Microscopic findings of angiomyolipoma of the right kidney stained by Hematoxylin-Eosin. The tumor consisted of blood vessels, smooth-muscle cells, and adipose tissue.

病理組織所見

腫瘍標本は血管、平滑筋、成熟脂肪が無秩序に配列していた。腫瘍を構成する成分は脂肪組織が主体で異型細胞は見られなかった (Fig. 4)。免疫染色ではメラノサイトのマーカーである HMB-45, 平滑筋細胞のマーカーである α SMA, 血管内皮細胞のマーカーである CD34 全てが陽性であった。腫瘍塞栓の組織所見も腫瘍本体と同様であり、腫瘍塞栓を伴う右腎血管筋脂肪腫と診断した。

考 察

腎血管筋脂肪腫は腎の実質に発生する腫瘍性病変の約 3% とされており良性腫瘍に属している¹⁾。40~50 歳が好発年齢で自覚症状は側腹部痛、腹部腫瘤、血尿であるが本症例のように半数近くが無症状で検診等で診断される²⁾。腎血管筋脂肪腫は、腫瘍を構成する血管壁の厚さが不規則で内弾性板形成も不完全であることから、腫瘍血管が破綻して出血を来し腹痛や血尿の原因となることがある。腫瘍径 40 mm 以上の腎血管筋脂肪腫は出血の危険性が高いとされ積極的に治療介入をおこなうことが勧められている³⁾。

腫瘍塞栓の合併が報告されている腎悪性腫瘍は、報告症例の多い順に腎細胞癌、Wilms 腫瘍、平滑筋肉腫、脂肪肉腫であり、腫瘍塞栓の合併頻度は腎静脈内のもので 10~25%、下大静脈に進展するものが 3~10%、右心房まで到達するものは 1% と報告される⁴⁾。

一方、腫瘍塞栓の合併が報告されている腎良性腫瘍には、腎血管筋脂肪腫、血管腫、オンコサイトーマがあり、下大静脈塞栓を伴う腎血管筋脂肪腫は海外を含めて 90 例の報告がある⁵⁾⁶⁾。

下大静脈塞栓を伴う腎血管筋脂肪腫で経過観察が行わ

れた症例報告もあるが、肺動脈塞栓に至った死亡例の報告もあるため、やはり外科的な治療介入が第一選択となる^{7)~9)}。

一般的に無症状で小径の腎血管筋脂肪腫は経過観察の方針となることが多く、本症例も 1 年ごとの画像検査での経過観察の方針としていた。自覚症状がなかったため患者は以後来院せず、検診で再度腎腫瘍を指摘されて再来するまでの 4 年間で腫瘍は増大し、腫瘍塞栓の形成に至っていた。腎血管筋脂肪腫の腫瘍塞栓の形成と腫瘍径の増大の関連について定説はないが、腫瘍塞栓を伴う腎血管筋脂肪腫は腫瘍径 40 mm 以上である報告が多い¹⁰⁾。一方で腫瘍径 30 mm でも下大静脈内に腫瘍塞栓を形成した報告もある¹¹⁾。病理組織学的な検討では、腫瘍塞栓を形成した腫瘍で平滑筋細胞がより低分化であったとの報告があり、平滑筋成分の分化度と腫瘍の浸潤傾向との関連を指摘する仮説もあるが、小径の腎血管筋脂肪腫に対して生検を行うことは多くないため臨床的指標としては現実的ではないと思われる¹²⁾¹³⁾。

従って、腎血管筋脂肪腫の将来的な腫瘍塞栓の出現のリスクを評価する方法は、画像検査による腫瘍径測定以外にはないと言って良いと思われる。本症例のように初診時には小径であってもその後数年の経過で腫瘍径の急激な増大と腫瘍塞栓が出現する可能性もあるため、経過観察の頻度や期間については十分に注意が必要である。

一般的に小径で無症状の腎血管筋脂肪腫に対する経過観察の方法は明確には決められてはいないが、結節性硬化症に伴う腎血管筋脂肪腫診療ガイドライン¹⁴⁾では、小児成人を問わず腫瘍径 40 mm 以下で自覚症状のない腎血管筋脂肪腫合併を確認した場合は 1 年に 1 回の画像検査が推奨され、腫瘍径 40 mm 超や増大傾向のあるもの、症状のあるものでは切除や塞栓術も勧められている。結節性硬化症に伴う腎血管筋脂肪腫は腫瘍径の急速な増大と出血の可能性が高いと報告されている²⁾。結節性硬化症を伴わない腎血管筋脂肪腫についての 217 例の報告では 69% が増大を示さず、残りの患者も 1 年に 2 mm 以下の増大であった¹⁵⁾。しかし、頻度は低いものの本症例のように結節性硬化症を伴わない腎血管筋脂肪腫でも急激な腫瘍径の増大と腫瘍塞栓を形成する場合があります、定期的な画像検査による経過観察が重要であると思われる。

結 語

小径の右腎血管筋脂肪腫が経過観察の途絶えた 4 年間で急激に腫瘍径が増大し、下大静脈腫瘍塞栓も形成した 1 例を経験した。自覚症状のない小径の腎血管筋脂肪腫に対しても定期的な画像経過観察の重要性が再認識され

た。

文 献

- 1) Juan, C. et al.: New trends and evidence for the management of renal angiomyolipoma. *J Kidney cancer and VHL*. **9**: 33-41, 2022.
- 2) Nelson, CP. et al.: Contemporary diagnosis and management of renal angiomyolipoma. *J Urol*. **168**: 1315-1325, 2002.
- 3) Osterling, J. E. et al.: The management of renal angiomyolipoma. *J. Urol*. **135**: 1121-1124, 1986.
- 4) Sosa, RE. et al.: Renal cell carcinoma extending into the inferior vena cava. *J Urol*. **132**: 1097-1100, 1984.
- 5) 古城公佑・他：下大静脈腫瘍進展を伴った腎血管筋脂肪腫の1例。泌尿紀要, **62**: 21-24, 2016.
- 6) Kheir, P. et al.: Renal angiomyolipoma with IVC thrombus: A casereport. *Int J Surg Case Rep*. **70**: 149-153, 2020.
- 7) Flum, AS. et al.: Update on the diagnosis and management of renal angiomyolipoma. *J Urol*. **195**: 834-846, 2016.
- 8) Tam, Y. et al.: A right renal angiomyolipoma with IVC thrombus and pulmonary embolism. *Int Urol Nephrol*. **42**: 306-308, 2010.
- 9) 篠原規恭・他：腎血管筋脂肪腫による肺動脈血栓症を来した高齢者の1剖検例。日老医誌 **36**: 420-424, 1999.
- 10) Riviere, A. et al.: Nephron sparing surgery for renal angiomyolipoma with inferior vena cava thrombus in tuberous sclerosis. *Case Rep Urol*. 2014: 285613, 2014.
- 11) 酒井豊・他：血管筋脂肪腫に下大静脈内腫瘍血栓を合併した結節性硬化症の1例。泌尿紀要, **43**: 539, 1997.
- 12) Islam, A. H. M. M. et al.: Angiomyolipoma of kidney involving the inferior vena cava. *Int J Urol*. **11**: 897-902, 2004.
- 13) Yarmish, G and DiPoce, J: Case 199 aggressive angiomyolipoma with renal vein thrombosis and pulmonary fat embolus. *Radiology*. **269**: 615-618, 2013.
- 14) 日本泌尿器科学会, 日本結節性硬化症学会(編): 結節性硬化症に伴う腎血管筋脂肪腫診療ガイドライン 2016年版～
- 15) KE Chan. et al.: Surveillance imaging for sporadic angiomyolipoma less than 40 mm. *Ann R Coll Surg Eng*. **100**: 480-484, 2018.

ANGIOMYOLIPOMA OF THE RIGHT KIDNEY WITH TUMOR THROMBUS EXTENDING IN TO THE INFERIOR VENA CAVA: A CASE REPORT

MASAKAZU AKITAKE, GENSHIROU FUKUCHI, SHIGETOMO YAMADA AND KEIJIROU KIYOSHIMA

Department of Urology, Japanese Red Cross Fukuoka Hospital, Fukuoka, Japan

Abstract :

A 55-year-old woman had a small mass of the right kidney pointed out in 2014, and she then visited our hospital. Computed tomography showed a right renal tumor (17 mm in diameter) presenting equal density to normal fat tissue, and accordingly she was diagnosed with angiomyolipoma of the right kidney. She was recommended to undergo a periodic examination once a year, however, she did not attend any further examinations after that. In 2018, a right renal tumor was pointed out at a medical check-up, and she again came to our hospital. Computed tomography revealed a right renal tumor that had grown to 65mm in diameter and that had formed a tumor thrombus extending in to the inferior vena cava. The patient underwent right nephrectomy and extraction of the tumor thrombus. Pathological diagnosis was angiomyolipoma of the right kidney with no evidence of malignancy. No signs of recurrence or metastasis have been observed since the operation.

(Nishinohon J. Urol. **84**: 558-561, 2022)

key words: renal angiomyolipoma, tumor thrombus