

外科的治療を行った巨大 cystic nephroma の 1 例

長崎大学病院泌尿器科・腎移植外科¹⁾ 長崎みなとメディカルセンター 泌尿器科²⁾

長崎みなとメディカルセンター 病理診断科³⁾

土山彩華^{*1)}・竹原浩介²⁾・入江準二³⁾・渡辺淳一²⁾

(受付日: 2024 年 6 月 3 日, 受理日: 2024 年 10 月 29 日)

抄録:

症例は 89 歳, 男性。食思不振, 心窩部の違和感が持続し, 増大傾向の左腎に多房性の嚢胞性腫瘍を認め当科受診した。CT 検査の結果, 左腎の腫瘍は直径 20 cm を超え, 消化管を圧排しており, 消化器症状の原因と判断した。画像上は, 嚢胞壁や隔壁の肥厚は認めなかった。Bosniak 分類 II F の多房性嚢胞性腎腫瘍に対して, 症状緩和目的の手術が必要と判断した。高齢で, 高度の腎機能障害があるため, 腎温存手術の方針とし, 側腹部斜切開, 経後腹膜アプローチでの開放手術を施行した。直視下に嚢胞壁を確認しながら, 可及的に切除した。術後, 消化器症状は速やかに改善した。病理組織学的には多房性の嚢胞を認め, 嚢胞は 1 層の hobnail 状の細胞に覆われていた。臨床所見および病理組織学的所見により, cystic nephroma (CN) と診断した。CN は比較的稀な良性の嚢胞性腎疾患であり, しばしば腎細胞癌との鑑別が問題となる。本症例のように, 巨大な多房性嚢胞性腎腫瘍で, 画像上悪性の可能性が低いと判断される場合には, 症状改善目的での嚢胞切除術も治療の選択肢の一つになりうると考えられた。(西日泌尿. 87 : 63-66, 2024)

キーワード: Cystic nephroma, 外科的治療

緒言

CN は, 比較的稀な良性の腎の嚢胞性疾患である。今回われわれは外科的治療を行った CN 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 89 歳, 男性。

主訴 食思不振, 心窩部の違和感。

家族歴 透析, 腎不全の家族歴なし。

既往歴 胸部大動脈解離, 胸部大動脈瘤, 慢性腎臓病 G4 A1, 高尿酸血症, アスベスト関連胸膜疾患, 肺気腫, 白内障。

現病歴 初診の約半年前より食思不振, 心窩部の違和感が出現し近医を受診した。精査で左腎に増大傾向の多房性嚢胞性腫瘍を認め精査目的に当科紹介となった。

現症 腹部触診で腹部に腫瘍を触知した。

一般検査所見 WBC 6,700/ μ L, RBC 3.75 $\times 10^6$ / μ L, Hb 11.9 g/dL, PLT 125 $\times 10^3$ / μ L, BUN 44.4 mg/dL, Cre 1.97 mg/dL, eGFR 25.5 mL/min/1.73m², CRP 0.27 mg/dL, AST 12 U/L, ALT 7 U/L, 尿検査異常なし。

画像検査所見 単純 CT 検査で左腎に約 24 $\times$ 24 $\times$ 14 cm の巨大な多房性の嚢胞性腫瘍を認めた。腎実質は下方かつ腹部正中を超え右側に圧排されていた。無数の小さな嚢胞が多発し, 正常の左腎も圧排され右側に偏位していた (Fig. 1)。他院で撮影された 13 年前の単純 CT 検査の所見と比較すると, 推定容量は 1,500 cc から 4,200 cc に増大していた。消化管の圧排も明らかであり, 巨大な嚢胞性腎腫瘍が消化器症状の原因と判断した。MRI 検査では, 多数の薄く平滑な隔壁を認めたが, 石灰化や肥厚した隔壁はなかった。拡散強調画像では高信号域を認めなかった (Fig. 2, Fig. 3)。

以上より, Bosniak 分類 II F の多房性嚢胞性腎腫瘍に対して, 症状緩和目的の減圧手術が必要と判断した。高齢で, 高度の腎機能障害があるため, 腎温存手術の方針とし, 小切開での側腹部斜切開, 経後腹膜アプローチによる開放手術を施行した。

手術所見 皮膚切開は 6 cm で, 肉眼的に小さな多房性嚢胞を認めた。嚢胞壁は薄く, 内部は透明な液体で満たされていた。嚢胞壁を慎重に剥離し, 嚢胞を完全切除した。術中出血はなかった。術後, 消化器症状は速やかに改善した。

* 〒 852-8501 長崎県長崎市坂本 1 丁目 7 番 1 号
TEL 095-819 7234, FAX 095-819-7535

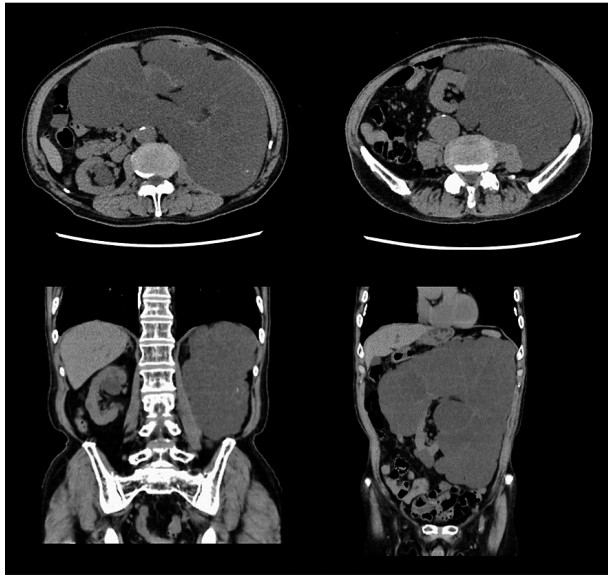


Fig. 1 CT scan shows an approximately 24×24×14 cm multifocal renal cyst in the left kidney. 150×141 mm (149×149 DPI)

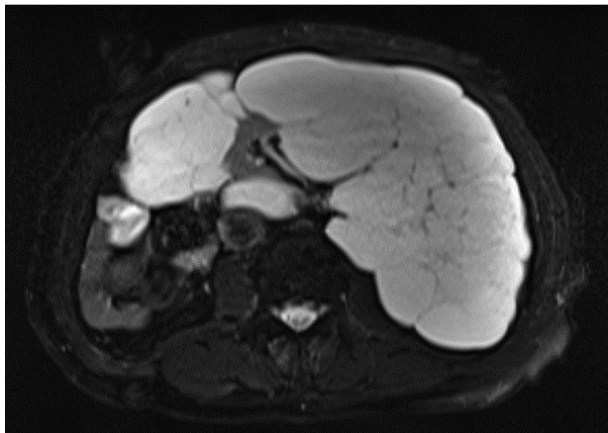


Fig. 2 Abdominal MRI T2-weighted images show numerous thin, smooth septa. 150×106 mm (149×149 DPI)

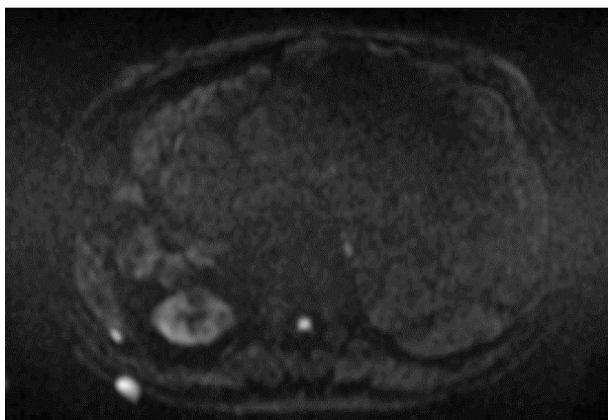


Fig. 3 Abdominal MRI diffusion-weighted images show no high-signal areas. 150×102 mm (149×149 DPI)

性の隔壁を無数に認めた。嚢胞壁を可及的に切除し、腎実質は温存した。嚢胞液は漿液性で2,800 ccを吸引した。手術時間は2時間26分であった。

切除標本 多房性の嚢胞性病変があり、嚢胞内腔には粘液を認めた。

病理組織学的所見 多房性の嚢胞を認め、嚢胞は1層の hobnail 状の細胞に覆われていた。嚢胞壁には平滑筋や痕跡的な尿管を認めた (Fig. 4)。

臨床所見、組織的所見より CN と診断した。術後、速やかに食思不振は改善し、術後の腹部 CT 検査では著明な嚢胞の縮小を認めた (Fig. 5)。

考 察

CN は良性の多房性嚢胞性腎腫瘍であり, solitary multilocular cyst, cystadenoma, benign multilocular cyst, benign cystic nephroma, cystic hamartoma,

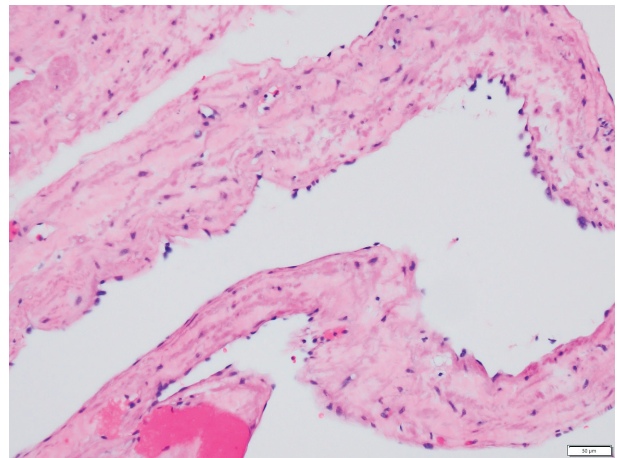


Fig. 4 Hematoxylin eosin staining shows multifocal cysts, and the cysts are covered with a single layer of hobnail cells. (×200) 423×317 mm (96×96 DPI)

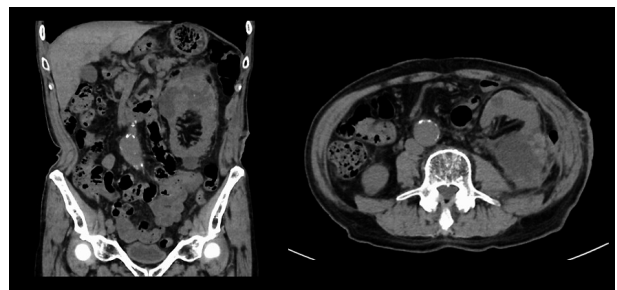


Fig. 5 Postoperative CT scan of the abdomen shows significant cyst reduction. 233×110 mm (96×96 DPI)

multilocular renal cyst, multilocular cystic nephroma, multi-cystic nephroma など多数の用語での報告例があり一定の見解が得られていないのが現状である¹⁾。林ら²⁾は、成人腎臓に発生する良性腫瘍ではほぼ全体が嚢胞成分から成るものは CN, 充実性の卵巣間質を含むものは mixed epithelial and stromal tumor (MEST) と診断され、両者の組織学的な特徴を考察している。2022 年の WHO の腎腫瘍の分類では、成人の CN は混合上皮間質腫瘍 MEST ファミリーの中に分類されている。一方、小児の CN は *DICER1 gene* の変異を認め、成人の CN とは異なる疾患として分類されている³⁾。

CN の診断基準は 1956 年の Boggs and Kimmelstiel⁴⁾ が提唱する 5 項目が 1989 年に Joshi and Beckwith⁵⁾ により改訂された。1. 複数の嚢胞と隔壁からなる。2. 病変は腎実質と境界明瞭な増殖を伴う腫瘤である。3. 嚢胞の輪郭をなす隔壁が唯一の固形成分である。4. 嚢胞は扁平な立方体または hobnail 状の上皮に裏打ちされている。5. 隔壁には尿細管に分化した線維組織を含む可能性がある。自験例はこれらの診断基準をすべて満たし、CN として矛盾しない所見であった。

花房ら⁶⁾は多房性腎嚢胞の本邦報告例 70 例について報告し、主訴としては、腹部腫瘤触知が最も多く、血尿、疼痛も認められた。近年では無症状で画像検査により偶発的に診断される例も多い。治療法については、腎細胞癌の合併や嚢胞状腎癌との鑑別が困難なこともあり、54 例で腎摘除術、10 例で腎部分切除術、5 例で嚢胞切除術、1 例で尿管全摘術が行われていた。Granja ら⁷⁾は小児症例も含めた 179 例の multilocular CN を検討し、10 歳以下が約 40% を占め、11 歳以上では、50 代で最も多く、女性が 80% を占めていた。症状は腫瘤 54 例 (35.2%)、偶発腫瘍 36 例 (23.2%)、腹痛 29 例 (18.7%)、血尿 11 例 (7.1%) であった。腫瘍径の中央値は 90 mm、経皮的生検が 21 例 (11.7%) に施行、治療としては腎摘が 135 例 (80.8%)、腎部分切除が 31 例 (18.5%) に施行されていた。腫瘍径が大きく、悪性の可能性が否定できないため、腎摘術が多くの症例で選択されており、手術前に確実な鑑別を行うことは難しいと思われる⁸⁾。手術適応に関しては、Bosniak 分類が有用であり、Bosniak III で悪性の平均の確率は 65% (31-100%) とされるが⁹⁾、絶対的な指標とはいいきれない。悪性の鑑別のために嚢胞穿刺による生検を行うことは、偽陰性の可能性や播種の危険性を考慮する必要がある¹⁰⁾。CN に合併する腎細胞癌や嚢胞状腎細胞癌は low grade な clear cell carcinoma が多いとされ¹¹⁾、経過観察を行い、悪性を疑う所見がある場合に外科的治療を施行することも選

択肢の一つとなるが、10 年経過ののちに悪性化した報告もあり¹²⁾、慎重な観察が必要である。

自験例は画像所見で悪性の根拠に乏しく、また超高齢かつ高度の腎機能障害もあることから、症状改善目的の減圧を目的とした腎温存手術を選択した。腹腔鏡下での嚢胞切除術では長時間かつ出血量増加の懸念もあり、小切開での後腹膜アプローチでの手術を選択した。病理組織学的にも悪性所見はなく、症状改善のために減圧が有効であった。臨床所見から CN が疑われ、良性の可能性が高い場合には症状改善目的の嚢胞の切除術も治療の選択肢の一つと考えられる。

結 語

症候性の巨大な CN に対して外科的治療で症状改善した 1 例を経験した。診断や治療に関して現状議論の余地が多く、若干の文献的考察を加えて報告した。腫瘍径や術後の予想される腎機能も含めた患者背景を考慮し、個々の症例に応じて手術適応および術式を検討する必要がある。

(本論文の要旨は第 279 回日本泌尿器科学会長崎地方会にて発表した。)

利益相反自己申告：申告すべきものはなし。

文 献

- 1) Castillo, O. A. et al.: Multilocular cysts of kidney. A study of 29 patients and review of literature. *Urology*. **37**: 156-62, 1991.
- 2) 林 洋子・他：腎 Mixed epithelial and stromal tumor の 1 例。診断病理。 **25**: 257-260, 2008.
- 3) Li, Y. et al.: Pediatric cystic nephroma is morphologically, immunohistochemically, and genetically distinct from adult cystic nephroma. *Am. J. Sug. Pathol.* **41**(4): 472-481, 2017.
- 4) Boggs, L. K. and Kimmelstiel, P.: Benign multilocular cystic nephroma: report of two cases of so-called multilocular cyst of the kidney. *J. Urol.* **76**(5): 530-41, 1956.
- 5) Joshi, V. V. and Beckwith, J. B.: Multilocular cyst of the kidney (cystic nephroma) and cystic, partially differentiated nephroblastoma. Terminology and criteria for diagnosis. *Cancer*. **64**: 466-479, 1989.
- 6) 花房隆範・他：多房性腎嚢胞の 1 例。泌尿器外科。 **15**(2): 147-149, 2002.
- 7) Granja, M. F. et al.: Multilocular cystic nephro-

- ma : a systematic literature review of the radiologic and clinical findings. *AJR Am. J. Roentgenol.* **205** : 1188-1193, 2015.
- 8) 藤田昌弘・他 : 腎盂内に突出した Cystic nephroma の 1 例. *泌尿器紀要*. **56** : 577-580, 2010.
- 9) Smith, A. D. et al. : Bosniak category IIF and III cystic renal lesions : outcomes and associations. *Radiology*. **262** : 152-160, 2012.
- 10) Baio, R. et al. : Cystic nephroma treated with nephron-sparing technique: a case report. *Mol. Clin. Oncol.* **14**(6) : 109, 2021.
- 11) 寺地敏郎 : 腎嚢胞性病変を伴う腎細胞癌. *泌尿紀要*. **41**, 697-701, 1995.
- 12) 我喜屋宗久・他 : 10 年の経過で悪性化を確認し得た多房性腎嚢胞の 1 例. *泌尿器外科*. **16**(6), 691-694, 2003.

PARTIAL SURGICAL RESECTION OF AN ENLARGED CYSTIC NEPHROMA : A CASE REPORT

AYAKA TSUCHIYAMA

Department of Urology and Renal Transplantation, Nagasaki University Hospital, Nagasaki, Japan

KOSUKE TAKEHARA AND JUNICHI WATANABE

Department of Urology, Nagasaki Harbor Medical center, Nagasaki, Japan

JUNJI IRIE

Department of Pathology, Nagasaki Harbor Medical Center, Nagasaki, Japan

Abstract :

This report describes the case of an 89-year-old man with anorexia and pericardial discomfort who visited our hospital. A computed tomography (CT) scan revealed a mass (>20 cm in diameter) in the left kidney compressing the gastrointestinal tract, which was determined as the cause of the digestive symptoms. Imaging revealed the absence of a thickening of the cyst wall or septum in the cystic tumor. The patient was diagnosed with an enlarged left cystic nephroma (CN). We decided that the CN with the Bosniak classification IIF must be surgically removed in order to relieve the symptoms. Given the patient's advanced age and severe renal dysfunction, we opted for renal-sparing surgery. Open surgery was performed through a lateral oblique abdominal incision using the trans-retroperitoneal approach. The cyst wall was resected as much as possible while under direct observation. Postoperatively, the gastrointestinal symptoms subsided quickly. Histopathological examination revealed multifocal cysts covered with a single layer of hobnail cells, further confirming CN. CN is a relatively rare, benign cystic kidney disease that can be challenging to distinguish from renal cell carcinomas. Therefore, partial nephrectomy may be an option for symptomatic relief when imaging results indicate a low probability of malignancy.

(Nishinohon J. Urol. **87** : 63-66, 2024)

key words : Cystic nephroma, surgical resection