大動脈原発悪性腫瘍の1例

櫻井雅浩 前山俊秀*

きわめて稀とされる大動脈原発悪性腫瘍の1例を経験した。症例は54歳男性で、維持透析患者であった。間欠性跛行を主訴として入院。閉塞性動脈硬化症の診断で手術を行った。大動脈内には寒天様物質が充満しており、迅速診断で悪性細胞が指摘された。術後、免疫組織学的検索により、平滑筋肉腫の確定診断を得た。大動脈原発の悪性腫瘍は、診断、治療に、多くの問題を抱えているため、文献的考察を加え報告する。日心外会誌23巻1号：50-53(1994)

Keywords : 大動脈原発悪性腫瘍, 平滑筋肉腫

Primary Leiomyosarcoma of the Aorta

Masahiro Sakurai and Toshihide Maeyama* (Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Tohoku University School of Medicine, Sendai, Japan and Department of Surgery, Sendai Social Insurance Hospital*, Sendai, Japan)

A 55-year-old male on regular hemodialysis was referred to our department for evaluation of intermittent claudication. Abdominal aortography demonstrated occlusion of the abdominal aorta below the superior mesenteric artery. The patient underwent reconstruction of the abdominal aorta by Y-grafting. The occluded abdominal aorta was filled with a gelatin like tumor in which malignant cells were identified histopathologically. Immunohistochemical examination of the malignant cells showed negative results for factor VIII antigen but positive results for actin antigen, which suggested that the cells were of smooth muscle cell origin and the tumor was diagnosed as leiomyosarcoma. The patient's condition gradually deteriorated and he died at eleven months after the initial surgery because of generalized dissemination of the tumor. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 23 : 50-53(1994)

症 例

症例：54歳，男性。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：1969年，交通事故で，肝破裂のため手術。1989年8月ごろより腎機能低下がみられ，同年10月血液透析導入となる。

現病歴：1990年3月ごろより，50mの歩行にて，両側大腿から膝関節部にかけての重苦しさ，痺れを訴え近医受診し，閉塞性動脈硬化症の疑いで当院紹介，入院となる。

入院時所見：身長171cm，体重54kgで全身の皮膚は乾燥していた。血圧は150/100mmHg，脈拍72/分 整で，心雑音および血管雑音を聴取しなかった。上腹部正中に手術瘢痕創を認めた以外胸腹部に異常を認めなかった。両側大腿動脈以下

の動脈拍動は触知しなかった。趾尖光電脈波では，左右全趾において平坦であった。心電図上では，異常Q波やST上昇は認められなかったが，左室肥大が認められた。血液検査では，表1に示すように，高度の貧血と腎障害を示した。総コレステロール，トリグリセリド，HDLコレステロールはすべて正常範囲の値を示した。

CT所見（図1）：1990年6月18日に施行した腹部大動脈は，上腸間膜動脈分岐部から左右腎動脈分岐部まで，中心部に血栓と思われる低吸収域とその周囲にリング状の造影増強効果を認めた。また，腹部大動脈下部から左右総腸骨動脈にかけては，壁の石灰化が認められるが，内腔の狭窄はなかった。

血管造影所見（図2）：1990年6月20日に施行した腹部大動脈は，上腸間膜動脈を分岐した後，完全に閉塞し，両側腎動脈は描出されなかった。また，上腸間膜動脈の起始部に片側性で，辺縁平滑な充盈欠損(filling defect)が認められた。また，

1992年7月10日受付，1993年5月6日採用
東北大学胸部外科 〒980 仙台市青葉区星陵町1-1
*仙台社会保険病院外科

表1 入院時検査結果

Na : 134 mEq/l	WBC : 5110/mm ³
K : 5.0 mEq/l	RBC : 284×10 ⁴ /mm ³
Cl : 101 mEq/l	Hb : 7.2 g/dl
	Ht : 22%
BUN : 32 mg/dl	Plt : 246×10 ⁴ /mm ³
PCr : 7.6 mg/dl	
尿酸 : 4.1 mg/dl	
総コレステロール : 222 mg/dl	
中性脂肪 : 188 mg/dl	
HDL コレステロール : 44 mg/dl

図1

腹部大動脈中心部の血栓と思われる低吸収域周囲にリング状の造影増強効果を認めた。

図2 上腸間膜動脈起始部の filling defect

図3 腹部大動脈に充満していた寒天様物質

上腸間膜動脈より左結腸動脈を介する発達した側副血行路が尾側にむかって認められ、下半身の血流を担っていた。

手術所見：1990年6月28日、腹部正中切開により開腹した。肝、脾の色調は暗く、不良であった。また、腸管の蠕動も良好ではなかった。脾、膵、腸管を脱転し大動脈に達した。上腸間膜動脈と腹腔動脈幹は、大動脈分岐部より、3 cm まで、硬く閉塞していた。両側腎動脈は、腎門部まで硬く閉塞していた。両側総腸骨動脈は、あまり硬くなく、動脈硬化は、わずかであると考えられた。大動脈を腹腔動脈直上で、コントロールし、これを切断すると内腔は、硬く弾力性に富んだ黄色の寒天様の物質で充満しており（図3）、いわゆる動脈硬化とはまったく性状を異とするものであった。上腸間膜動脈、腹腔動脈幹も、同様の物質で充満していた。同部の寒天様物質は押し出すと容易に血管内より脱出し、その後、血液逆流が認められた。この物質は、迅速病理組織学診断では、悪性線維腫、または心臓由来の粘液肉腫と診断された。続いて、内腔が十分に得られる腹腔動脈分岐部直上の大動脈から、左右総腸骨動脈までをY型人工血管を用いて再建し、腹腔動脈と上腸間膜動脈は人工血管に端側吻合により再建した（図4）。

病理組織所見：弾性繊維の形成を伴って、内皮様の分化を示す部分と、中膜の平滑筋様の分化を示す部分がみられた。また、平滑筋アクチン抗原陽性で、坑第8因子関連抗原は陰性であったことより（図5）、平滑筋肉腫と診断された。

図4 手術のシエーマ
斜線部は腫瘍の占拠部位である。

図5 平滑筋 α アクチン抗原陽性部分

術後、両足背動脈を良好に触知した。また、第3病日より血液透析を再開した。術後第24病日より、エピルビシン、サイクロフォスファミド、アドリマイシン、ダカルバジンによるCIVADIC療法を開始したが、CT上、大動脈と左右腎周囲に再発を認めたので、1990年11月26日、残存大動脈周囲腫瘍と両側腎の摘出を施行した。摘出腎の腎動脈は両側とも腫瘍により完全に閉塞しており、病理組織学的には、腎実質に平滑筋肉腫の浸潤が認められた。その後、経過観察を行っていたが、1991年2月ごろより右鼠径部に拍動性腫瘤を認め、摘出したところ平滑筋肉腫による仮性動脈瘤であった。その後、全身状態は回復せず、1991年5月18日癌性悪液質により死亡した。

考 察

大動脈原発の悪性腫瘍の報告はきわめて稀であり、文献的に検索しえた限りでは、過去47例の報告があるのみであった。初発症状は、腹痛14例、腰背部痛11例、胸痛4例、間欠性跛行8例、下肢痛10例、浮腫2例であった。他覚的所見としては、高血圧13例、下肢動脈拍動の減弱化を10例に認めた。画像診断では、血管造影における、限局性かつ偏在性のfilling defectが、造影施行30例中14例に認められており、大動脈原発悪性腫瘍に特徴的な血管造影所見と考えられる¹⁾。また、術前診断の行われたものは、わずかに4例(Guvendik²⁾, Manson³⁾の2症例は画像診断により疑診がもたれたが2例は皮膚転移の生検による)であった。他の症例の診断は、術中迅速診断によるもの10例、術後切除標本検索によるもの14例、剖検によるもの15例であった。

本症例では間欠性跛行を主訴としたこと、血管造影上のfilling defect所見、CT上、大動脈中心部に低吸収域を認め、通常の血栓や動脈硬化の際の壁在血栓とは異なった所見等、閉塞性動脈硬化症の診断としては多少の疑問を持ったが、血行再建を目的として手術に踏み切った。また、Hopkinsら⁴⁾の指摘しているように大動脈原発悪性腫瘍の増殖速度ははやく同様に再発、転移も多い。

血行再建または梗塞巣切除後1年以上の生存を得たものはわずかに2例であり、16例は4週以内に再発または塞栓による臓器不全、敗血症で死亡し、その他の症例では1年以内に全身転移によって死亡している。本症例における短期間での腎不全への移行や、跛行の出現、また術前8日前には血管造影で血流を認めた腹腔動脈や、上腸間膜動脈起始部が術中所見では完全に閉塞していたことは、急激な腫瘍の増大によるものと考えられた。また、本症例でも初回手術より死亡まで11か月間であったが2度にわたり病理組織学的に再発が確認されており、大動脈原発悪性腫瘍の予後はきわめて不良であるといわざるをえない。治療は他の悪性腫瘍と同様に外科的手術が第一選択であるが、術前診断がつきにくいこと、腫瘍増殖速度が

速いことより、完全摘出はきわめて困難であり、大動脈平滑筋肉腫では、腫瘍を完全に摘出した症例は報告されていない。

本症例は、術中迅速診断で悪性細胞を指摘された一例であり、治療切除のため両側腎摘や腰椎動脈切除等の広範囲郭清が必要と考えられたが、維持透析患者であることから侵襲が過大になることをおそれ、Y型人工血管置換術にとどまらざるをえなかった。

術後の化学療法については、種々の薬剤が使用されているが、有効性においては否定的な見解が多い。そのなかで、生存期間の延長がみられたとの報告のある、CIVADIC療法を選択したが、短期間のうちに再発死亡はまぬがれなかった。

結 語

きわめて稀な腹部大動脈原発の平滑筋肉腫の一

例を経験した。

文 献

- 1) Higgins, R., Posner, M. C., Moosa, H. H. et al.: Mesenteric infraction secondary to tumor emboli from primary aortic sarcoma. *Cancer* **68**: 1622-1627, 1991.
- 2) Guvendik, L., Ross, J. K. and Marshall, R. J.: Primary aortic malignant fibrous histiocytoma: A successfully treated case by surgical excision. *Ann. Thorac. Surg.* **42**: 578-580, 1986.
- 3) Manson, M. S., Wheeler, J. R., Gregory, R. T. et al.: Primary tumor of the aorta: Report of a case and review of the literature. *Oncology* **39**: 167-172, 1982.
- 4) Hopkins, G. B.: Leriche syndrome associated with leiomyosarcoma of the right common iliac artery. *JAMA* **206**: 1789-1790, 1968.