巨大な後腹膜軟骨肉腫の 1 例

中野総合病院内科

本橋 豊◇ 本間 健 平賀 正純

坂本 尚登 稲月 文明

中野総合病院放射線科

船津徹太郎

A CASE OF HUGE RETROPERITONEAL CHONDROSARCOMA

Yutaka MOTOHASHI, MD, Takeshi HONMA, MD, Masazumi HIRAGA, MD,

Hisato SAKAMOTO MD and Bunmei INAZUKI, MD

Department of Medicine, Nakano General Hospital, Tokyo

Tetsutaro FUNATSU, MD

Department of Radiology, Nakano General Hospital

概要 後腹膜に発生する腫瘍の中で軟骨肉腫の報告はきわめて少ないが、われわれは報告例中最大と思われる後腹膜軟骨肉腫の 1 例を経験したので報告する。症例は 66 才の男性で、上腹部腫瘍を主訴として入院。肝シンチにて肝右葉の大半を占める欠損像、超音波検査にて数個の嚢胞形成を伴う上腹部の腫瘍像、腹部 CT にて脊椎前面より上腹部の約 4 分の 3 を占める腫瘍像、腹部血管造影にて右肝動脈の伸展像と無血管野を認めた。上記の所見より嚢胞を有する腫瘍性病変が疑われたが、この腫瘍が肝内のものか肝外のものかの診断は難しかった。開腹手術による生検の結果、後腹膜に発生した巨大な軟骨肉腫と判明した。腫瘍は肝臓、胃、右腎、下大静脈を圧迫しており、摘除の結果 $33 \times 22 \times 10$ cm、重量 2600 g と判明した。これは報告例中最大のものと思われる。一般に後腹膜腫瘍は巨大な腫瘍となることが多いにもかかわらず診断の確定が難しい。近年進歩の著しい諸種の画像診断にて、部位診断は比較的容易になつたにもかかわらず、必ずしも確定診断には至らないことが多い。腹部腫瘍の鑑別診断上、本症例のような後腹膜腫瘍をつねに念頭に置くことが重要である。

はじめに

後腹膜に発生する腫瘍は腹部腫瘍として触知しうる 경우가多く、手術治療により予後良好の症例が多いので、早期の適切な診断が重要であるにもかかわらず、腹腔内腫瘍病変との鑑別が実際には困難である。後腹膜腫瘍は病理学的にはリンパ肉腫、脂肪肉腫、平滑筋肉腫などの報告があるが、軟骨肉腫の報告はきわめて希である。われわれは上腹部腫瘍を触知し、諸種の画像診断にても腹腔内の嚢胞性疾患との鑑別が困難で、開腹手術にて

巨大な軟骨肉腫と確定診断しえた症例を経験したので報告する。

症 例

患者： 66 才、男性、会社員。

主訴： 上腹部腫瘍、食欲不振、体重減少。

家族歴： 特記すべきことなし。

既往歴： 45 才、肺結核。

現病歴： 昭和 42 年に右側腹部に腫瘍ができて手術をしたが、このときは腐敗臭の強い膿を排膿したという。その後著変なく経過していたが、昭和 55 年 6 月頃より起床時悪心が強く、食欲不振も強くなつてきた。9 月になつて心窩部に硬い腫瘍があるのに気づき、その後増大してくるのを感じ

〔昭和 57 年 3 月 8 日受稿〕

本症例は第 316 回日本内科学会関東地方会(昭和 56 年 12 月 12 日)で発表した。

た。昭和56年1月当院外来受診し、肝シンチにて肝右葉の占拠性病変を指摘され精査のため入院となる。

入院時現症：身長169.5cm, 体重60kg, 血圧170/90mmHg, 脈拍60/分整, 貧血・黄疸は認めない。表在リンパ節は触知せず。頸部静脈の軽度怒張を認める。胸郭は右側が陥凹し左右不对称。呼吸音は右側で著明な低下。心雑音なし。肺肝境界第4肋間。腹部：肝臓を心窩部にて約10cm触知する。辺縁鈍、硬、表面平滑、可動性少。右側腹部の肋骨切除部よりヘルニア状に数個の腫瘤を一塊として触知する。表面粗造、硬、可動性少で上腹部腫瘤とつながっていると考えられた(図1)。脾臓は触知せず。腹壁静脈の怒張著明。腹水なし。下腿浮腫を両下肢に認める。神経学的に異常なし。

入院時検査成績：主要検査成績は表1に示すとおりである。末梢血にて軽度の大球性正色素性

図1. 腹部所見

図2. 肝シンチグラム。肝右葉にだるま状の巨大な陰影欠損像がある。

表1. 主要検査成績

尿検査		血糖	89 mg/dl
蛋白	(+)	T.Bil	0.9 mg/dl
糖	(-)	D.Bil	0.6 mg/dl
潜血	(-)	総蛋白	6.7 g/dl
沈渣にて硝子円柱を認む		血清蛋白分画	
末梢血		アルブミン	66.1 %
赤血球数	354 × 10 ³ /mm ³	α ₁ -グロブリン	2.6 %
ヘモグロビン	12.3 g/dl	α ₂ -グロブリン	7.7 %
ヘマトクリット	37.4 %	β-グロブリン	10.4 %
白血球数	4200/mm ³	γ-グロブリン	12.9 %
白血球像(%)		BUN	25 mg/dl
桿状核球(4), 分葉核球(62)		クレアチニン	1.43 mg/dl
好酸球(7), リンパ球(20)		Na	143 mEq/l
単球(7)		K	5.0 mEq/l
血小板数	13.3 × 10 ⁴ /mm ³	Cl	105 mEq/l
血沈	2 mm (1時間)	血清学的検査	
凝血学的検査		CRP	(-)
出血時間	1分	HBsAg	(-)
凝固時間	10分	HBsAb	(-)
P.T	11.8秒(対照12.2秒)	CEA	1.54 ng/ml
APTT	44.4秒(対照28秒~45秒)	α ₂ -フエクトプロテイン	1.0 ng/ml
血液化学検査		腎機能検査	
GOT	27 U	PSP (15分)	25 %
GPT	17 U	クレアチニンクリアランス	50 ml/分
γGTP	90 mU/ml	Fishberg 濃縮試験	
LDH	105 IU	最高	628 mOsm/kgH ₂ O
Ch-E	0.47 Δ PH	肝機能検査	
Al-P	59 IU	ICG (15分)	21 %
Amylase	231 IU/l	特殊検査	
T.Chol.	156 mg/dl	赤痢アメーバ抗体: 8 titer未満	
T.G.	87 mg/dl	エヒノコッカス血清反応	
TTT	1.0 u	補体結合反応	8倍 陽性
ZTT	8.3 u	間接赤血球凝集反応	陰性
		免疫電気泳動法	陰性

貧血と相対的好酸球増加症を認めた。尿検査では、蛋白尿と沈渣で硝子円柱を認めた。血液化学検査では、γ-GTPの軽度上昇とCh-Eの低下を認める以外に大きな異常は認めなかった。腎機能検査では、クレアチニンクリアランスの低下とFishberg濃縮試験で濃縮能の軽度低下を認めた。ICGは15分値で21%と延長を示した。胸部X線像では右肺野全体が陳旧性の胸膜炎によると思われる胸膜肥厚のため、濃厚な均等性陰影でおおわれていた。

臨床経過：入院時現症にて上腹部腫瘤を触れ、肝シンチ(図2)にて肝右葉全体を占める腫瘍性病変が疑われたため、まず肝内腫瘍を考へて諸検査をすすめた。超音波検査(図3)にて腹壁下約2.5cmより約10cmにわたり複数の嚢胞を伴った腫瘍状陰影を認めた。嚢胞内の壁は不整で嚢胞内に点状エコーを認めた。腹部CT(図4)にては腹部正中に近い部分より右腹部側壁にいたり、かつ椎体から腹壁下数cmにいたる隔壁を有すると思われる巨大な腫瘍陰影を認めた。腹部血管造影celiac angiography(図5)にては、腹腔動脈幹

図 3. 腹部エコー. 嚢胞形成を伴う巨大な腫瘍陰影を示す.

図 4. 腹部CT. 右上腹部の大半を占める巨大な腫瘍陰影を示す.

の左方偏位と右肝動脈の伸展像が認められたが、異常な腫瘍血管陰影は認められなかった。上部消化管造影検査では胃の大弯側が壁外性に圧排され左方へ偏位している所見であり、経静脈性腎盂造影では右腎の圧排によると思われる下方偏位の所見であった。以上のように、腫瘍が巨大であるにもかかわらず臨床症状に乏しく、検査所見にても悪性腫瘍を思わせる所見に乏しいため、まず肝嚢胞症を疑った。患者は第二次世界大戦中、北中国にて情報将校として約8年間従軍したという生活歴があり、寄生虫性疾患の可能性も考え検査をす

図 5. 腹腔動脈造影. 腹腔動脈幹の左方偏位と右肝動脈の伸展像を示す.

図 6. 軟骨肉腫の組織像 (HE染色, 400倍)

すめたが、赤痢アメーバ抗体・エヒノコックス血清反応はいずれも陰性であった。嚢胞内穿刺を試みたところ、嚢胞液は黄褐色の粘稠な液体で、鏡検にて寄生虫を認めず、細胞診にても異型細胞を認めなかった。上記のような経過にて確定診断がつかぬため、腫瘍摘除目的にて6月9日開腹手術を施行した。開腹すると肝臓は薄くひき伸され萎縮した状態で、その下に右上腹部全体を占める後腹膜腫瘍の存在が判明した。同時に施行した生検により軟骨肉腫と判明した(図6)。この時点で摘除術は施行されなかった。根治手術は昭和56年11月13日東京医科歯科大学第二外科にて施行され、2600gの嚢胞を有する巨大な後腹膜腫瘍が摘除され(図7)、摘除標本の病理学的検査により軟骨肉腫であることが確認された。手術直後に腎前性の

図7. 手術後の摘出標本、腫瘍の大きさは $33 \times 22 \times 10$ cm, 重量2,600g.

急性腎不全を合併したが、保存的治療にて回復し、以後経過は順調である。

考 案

本症例の特徴は次の2点にまとめられる。第1に本症例は後腹膜に発生した2600gの巨大な軟骨肉腫と判明したことである。この腫瘍が骨組織に由来するものか、extrasketalのものであるかは不明である。手術所見では骨組織との関係を裏づけるものではなく、extrasketalの可能性が考えられるが、本症例では14年前に詳細不明の肋骨切除(右の第12肋骨)を受けており、肋軟骨が原発であるという可能性も完全に否定することはできない。第2に本症例では上腹部腫瘤が後腹膜腫瘍であるか、腹腔内腫瘍であるかの鑑別が困難で、最終的には開腹手術による組織学的検査で診断が確定したことである。以下この2点にしばつて考察をすすめていくことにする。Ackermanの報告によれば、後腹膜に発生する悪性腫瘍で最も多いのはリンパ肉腫で、ついで脂肪肉腫・平滑筋肉腫であり、軟骨肉腫の記載はない¹⁾、一方成書の記載によれば、軟部組織に発生する悪性腫瘍で最も多い

のは脂肪肉腫であり、extrasketalの軟骨肉腫は2%できわめて希である²⁾。Stout³⁾の基準により、Goldenbergが1967年に集計したextrasketalの軟骨肉腫26例中最も多い発生部位は殿部・下肢の18例で、その他には肩・手に2例ずつ、膀胱・胸壁・上肢(手を除く)に1例ずつで、後腹膜に発生した軟骨肉腫は記載されていない⁴⁾。しかしその後の文献には、後腹膜の軟骨肉腫を記載したものが散見される⁵⁾⁶⁾。本邦では著者の検索しえた限りでは後腹膜に発生した軟骨肉腫は2例の報告があり、どちらもextrasketalであるとしている。第1例は5才4カ月の男児で、右上腹部腫瘤を主訴とした症例で重量500gの軟骨肉腫が摘除された⁷⁾。発生部位、自覚症状、好酸球増加症を認めた点で本症例と類似点が多い。第2例は51才の男性で、頻尿・排尿障害を主訴とし、小骨盤腔に発生した軟骨肉腫の症例で重量436gの腫瘍を摘除している⁸⁾。本症例が上記2例と比較して特徴的なことは、大きさが巨大であること、巨大になるまで自覚症状に乏しかつたこと、再発の可能性が否定できないことである。大きさに関してはextrasketalの軟骨肉腫では $2.0 \times 1.7 \times 1.5$ cm から 20×15 cmに至るものが報告されているが⁴⁾、本症例は $33 \times 22 \times 10$ cmで重量2600gであり、おそらく報告例中の最大のものであると思われる。次に臨床症状について言えば、一般に後腹膜腫瘍の主要症状は自覚的には腹痛、腹部腫瘤、体重減少であり、他覚的には腹部腫瘤、腹部の圧痛、腹部の突出、肝腫大であることが多い⁹⁾。本症例もほぼこのような主要症状を備えているが、2600gという巨大な大きさになるまで臨床症状に乏しかつたのは再発が疑われるにもかかわらず、転移が認められなかつたためと思われる。Goldenbergの報告では19例中5例に転移を認めるが、本邦例では3例のいずれにも明らかな転移は認められず、今後症例の蓄積によりこの点を明らかにする必要があると思われる。一方、明らかな転移が認められないにもかかわらず、本症例では巨大な腫瘍が周囲の臓器を広範に圧迫しており、肝右葉・十二指腸・横行結腸・下大静脈のそれぞれの一部摘除と右腎の

全摘出術を施行するという大手術となつた。再発に関してはGoldenbergの記載では19例中11例に再発を認め、再発は初回手術後2カ月から15年にわたり、しかも4例は2回以上の再発をおこしている⁴⁾。本症例は14年前に詳細不明であるが、右側腹部腫瘍の診断にて肋骨切除を伴う開腹手術を受けており、この腫瘍が軟骨肉腫であり今回は前回手術の未切除部より軟骨肉腫が再発した可能性は否定できない。手術後の再発が少なくないことより術後の経過観察はとくに重要であると思われる。

さて次に、本症例は肝シンチ、超音波検査、腹部CT、腹部血管造影等の検査にもかかわらず確定診断が困難であつたが、とくに最近進歩の著しい画像診断に重点を置いて考察をしていきたい。

本症例はまず肝シンチで肝内占拠性病変が疑われたが、これだけでは肝内性のものか肝外性のものかの鑑別は難しかつた。肝臓はもともと柔軟性に富んだ臓器であり、周囲臓器からの圧迫によりfalse positive liver scanをつくりやすい。Freemanらの文献には後腹膜腫瘍の圧迫によるfalse positiveの症例も記載されており、注意が必要である¹⁰⁾。

超音波検査では本症例のように腫瘍の存在、局在診断、周囲臓器との関係に関してはある程度明らかにされるが、組織像まで推測しうほどの診断的価値はなく、わずかに後腹膜血腫のみが診断しうるとされている¹¹⁾。本症例では扁平にひき伸され萎縮した肝臓の直下に嚢胞を伴つた腫瘍があり、これが肝内のものか肝外のものかについての診断はなかなか困難であつた。しかし図3から明らかなように、本症例は隔壁を有する嚢胞かまたは中心壊死を伴う腫瘍である可能性が超音波検査にて示唆され、鑑別診断の上で役立つ。本症例の場合は幸い腸内ガス像によつてエコー像が不鮮明になることはなかつたが、一般の後腹膜腫瘍の場合にはこのことが診断の妨げになると言われている¹²⁾¹³⁾。

腹部CTでは本症例においては脊椎骨の前面より腹壁前面に近い部分まで占める巨大な腫瘍陰影

の存在が示され、腫瘍の局在および隔壁を有する多房性構造も超音波検査より明確に示されている。一般に腹部CTでは超音波検査のように腸内ガスで画像が妨害されることもなく、腫瘍の局在、周囲臓器との関係、中心壊死の有無等が超音波検査より正確に描出され、診断的価値は高いとされている¹³⁾。しかし、超音波検査と同様に組織像まで推測しうほどの質的診断には至らないとされている。以上のような非侵襲的検査は患者に負担を与えることがなく、また経過観察に適しているために有用性が高い。

上記のような諸検査に加えて、腹部血管造影は後腹膜腫瘍の診断になお有用であると再評価されている。腹部血管造影は腫瘍の栄養動脈を明らかにし、腫瘍の局在を明確にするばかりでなく、その腫瘍が何であるかについて重要な示唆を与えてくれることがある。本症例は当初肝内占拠性病変の可能性が疑われたため、腹腔動脈造影が施行された。所見としては腹腔動脈幹の左方偏位、右肝動脈の伸展像と肝シンチの占拠性病変部に一致してavascular areaが認められた、胆管癌や転移性肝癌に認められることの多い石灰化像¹⁵⁾や、肝エヒノコッカス症に認められるcapillary phaseのhalo effect(嚢胞周囲のradiodensityの増加)¹⁴⁾も認められず、肝外性の腫瘍が疑われた。後腹膜腫瘍はlumbar arteryが栄養動脈となることが多く、Damascellらはaortographyの重要性を強調している。同時に彼らは、後腹膜腫瘍でも軟骨肉腫は脂肪肉腫や平滑肉腫のように単なるaortographyだけでは所見が得られず、さらにlumbar arteryへの選択的な血管造影が必要であることを示している。本症例では確定診断後aortographyが施行されたが、圧排所見のみだつた。

以上、後腹膜腫瘍の術前診断の困難さは従来のレントゲン診断に加え、腹部エコー・腹部CTのような最新の画像診断を用いても変ることはない。後腹膜腫瘍は希な腫瘍であるが、腹部腫瘍としては巨大になることが多く、理学的に腫瘍として触知しえても確定診断に至らず、つねにもどかしさがある。診断の上で最も重要なことは、つねに鑑

別診断上この疾患を念頭に置いていることである
ということを経後に強調したい。

おわりに

後腹膜に発生した重量2600gの巨大な軟骨肉腫
の1症例を報告し、臨床の特徴と鑑別診断の困難
性について考察を加えた。

謝辞 外科的治療につき御協力いただいた中野総合病院
副院長 仙石耕一先生、東京医科歯科大学第二外科 上原
孝一郎先生、久米進一郎先生、平山廉三先生に感謝いたし
ます。

文 献

- 1) Ackerman LV: Tumor of the retroperitoneum mesentery and peritoneum. AFIP: 9, 1954.
- 2) Davis-Christopher: Textbook of Surgery, Saunders Co, Philadelphia, 1977, p615.
- 3) Stout AP and Verner EV: Chondrosarcoma of the extraskeletal tissue. Cancer 6: 581, 1953.
- 4) Goldenberg RR, et al: Chondrosarcoma of the extraskeletal tissues. J Bone and Joint Surg 49-A: 1487, 1967.
- 5) Damascelli B, et al: Angiography of retroperitoneal tumors. A review. Amer J Roentogenol 124: 565, 1975.
- 6) Oyemade OA, et al: Retroperitoneal chondrosarcoma presenting with pleural effusion: A case report. J Natl Med Assoc 71: 1181, 1979.
- 7) 横山 隆, 他: 後腹膜に発生した軟骨肉腫の1例. 小児外科・内科 8: 1338, 1976.
- 8) 酒谷邦康, 橋本重夫: 小骨盤腹膜外より発生した軟骨肉腫—1摘出例. 臨床病理 27: 501, 1979.
- 9) Duncan RE and Evans AT: Diagnosis of primary retroperitoneal tumors. J Urol 117: 19, 1977.
- 10) Freeman LM, et al: False positive liver scans caused by disease processes in adjacent organs and structures. Brit J Radiol 42: 651, 1969.
- 11) Ponhold W und Czemberek H: Sonographische Differential-diagnose retroperitonealer Tumoren. Radiologie 20: 181, 1980.
- 12) de Santos LA, et al: Computed tomography in liposarcoma. Cancer 47: 46, 1981.
- 13) Stephans DH, et al: Diagnosis and evaluation of retroperitoneal tumors by computed tomography. Amer J Roentogenol 129: 395, 1977.
- 14) Rossi P and Ruzicka FF Jr: Differentiation of intrahepatic and extrahepatic masses by arteriography. Radiology 93: 771, 1969.