

多中心性に発生したと考えられる後腹膜脂肪肉腫の1例

岐阜大学第1外科, 同 臨床検査部病理*

二村 直樹 鬼束 惇義 林 勝知 柴田 雅也
阪本 研一 安村 幹央 広瀬 一 下川 邦泰*

S状結腸間膜に脂肪腫を合併し、多中心性に発生したと考えられる後腹膜脂肪肉腫の1例を経験したので報告する。症例は57歳の男性。1996年9月、近医通院中に行われた腹部超音波検査で左上腹部を中心とした腫瘍を指摘された。腹部超音波, CT, MRIにて正中から左腎の腹側と左腎の頭側から腎門に各1個の腫瘍が認められた。左腎の腹側の腫瘍は一部に脂肪が認められると判断し、このことから脂肪肉腫と診断した。手術所見では後腹膜に、左腎の腹側と左腎の頭側から腎門に各1個の腫瘍が存在し、それらは連続していなかった。画像診断にて左腎の腹側の腫瘍の一部は脂肪であると判断した部分はS状結腸間膜に存在する独立した腫瘍であった。これらを摘出した。病理組織検査では2個の後腹膜腫瘍は粘液型の脂肪肉腫であった。S状結腸間膜腫瘍は脂肪腫であった。脂肪腫を合併し、多中心性に発生した脂肪肉腫と考えられた。

はじめに

脂肪肉腫において複数の腫瘍が認められる場合、多中心性発生の概念が報告されている^{1,2)}。今回、多中心性に発生したと考えられる脂肪肉腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：57歳，男性

主訴：超音波検査上の腹部腫瘍

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：1994年，高血圧

1994年，閉塞性動脈硬化症で両側総腸骨動脈，両側内腸骨動脈の血栓内膜摘除術。

現病歴：1996年9月，近医通院中に行われた腹部超音波検査で左上腹部を中心とした腫瘍を指摘された。同年10月 精査のために当院放射線科に入院となった。自覚症状はなかった。

現症：左上腹部を中心に弾性硬，境界やや不鮮明な小児頭大の腫瘍を触知した。

血液検査：RBC $352 \times 10^4/\mu\text{l}/\text{ml}$ ，Hb 10.2g/dl，Ht 30.3%と正球性貧血，CRPの上昇(4.7mg/dl)を認めた。その他に特記すべき異常を認めなかった。

腹部の超音波検査，computed tomography (CT)検査，magnetic resonance imaging (MRI)検査で，正中

から左腎の腹側と左腎の頭側から腎門に各1個の腫瘍が認められた。

腹部超音波検査：内部エコー不均一で境界明瞭な2個の腫瘍を認めた。

腹部CT検査：左腎の腹側の腫瘍は最大径17cmであった。2個の腫瘍は単純CTでは比較的均一なdensityであったが，造影CTでは造影される部分とされない部分が混在していた(Fig. 1A, 1B)。また，左腎の腹側の腫瘍は尾側に脂肪と同程度のlow densityを示す部分が認められた(Fig. 1C, 1D)。

MRI検査：2個の腫瘍はT1強調画像で主にlow intensityを示した。左腎の腹側の腫瘍は中心がややhigh intensityを示し，尾側に脂肪と同程度の著しいhigh intensityを示す部分が認められた(Fig. 2)。T1強調画像でhigh intensityを示した尾側の部分は脂肪抑制画像より脂肪と診断した。T2強調画像では全体にhigh intensityを示した。

腹部大動脈造影：大動脈，脾動脈，左腎動脈から腫瘍に分布する細い血管が認められた。太い血管は認められなかった。

以上の結果から，正中から左腎の腹側に1個，左腎の腎門から頭側に1個の腫瘍が存在し，両腫瘍は画像上類似していた。左腎の腹側の腫瘍の一部に脂肪が認められることから脂肪肉腫と診断して手術を行った。

手術所見：上腹部正中切開で開腹すると，後腹膜に腫瘍を認めた。左腎の腹側にある腫瘍を摘出した後に

< 1999年9月22日受理 > 別刷請求先：二村 直樹
〒501 6206 羽島市新生町3 246 羽島市民病院外科

Fig. 1 Abdominal CT : Two mass lesions are detectable ; one on the ventral side of the left kidney with a diameter of 17 cm and one (arrow) between the rostral end and the hilus of the left kidney. The tumors have a rather uniform density on plain CT, while some parts of lesions are enhanced and others not on enhanced CT with contrast medium(A ; plain, B ; enhanced) A low density area(arrow head)is detectable in the caudal part of the tumor on the ventral side of the left kidney (C ; plain, D ; enhanced)

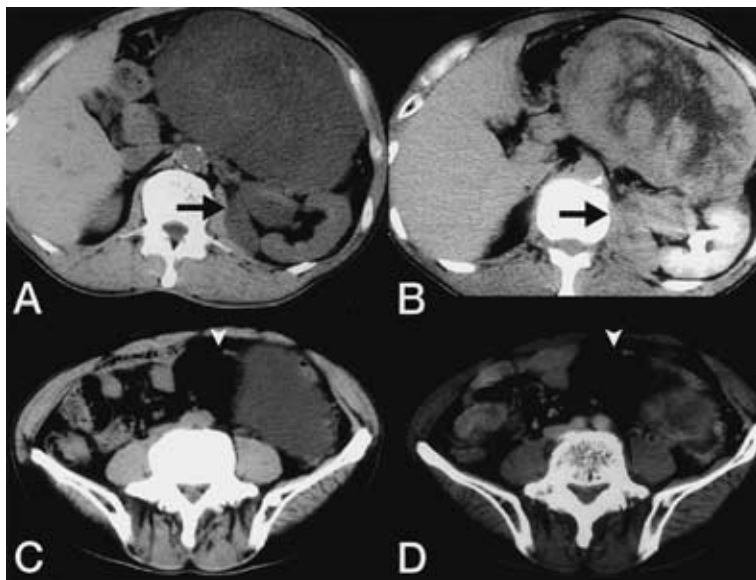


Fig. 2 T1 weighted MRI (sagittal section) : Two mass lesions are detectable ; one on the ventral side of the left kidney and one(arrow heads)between the rostral end and the hilus of the left kidney. The tumors exhibit a low intensity in most parts. A slightly high intensity is located in the center and a markedly high intensity area similar to fat is located in the caudal part of the tumor on the ventral side of the left kidney.

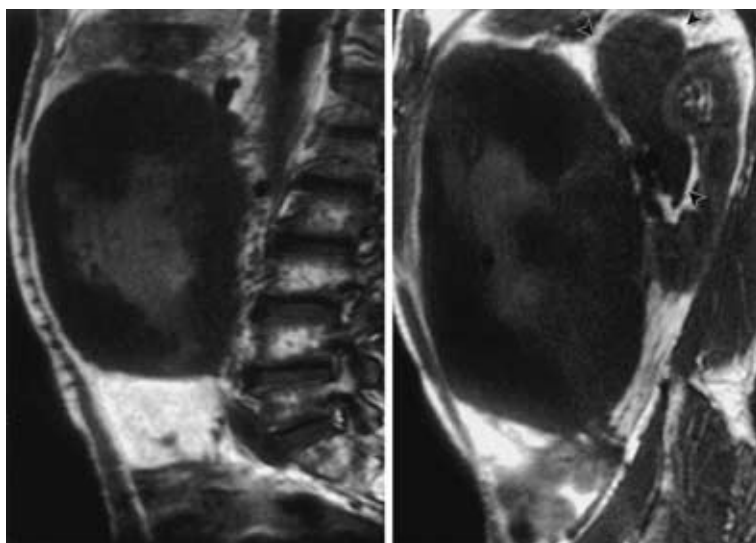
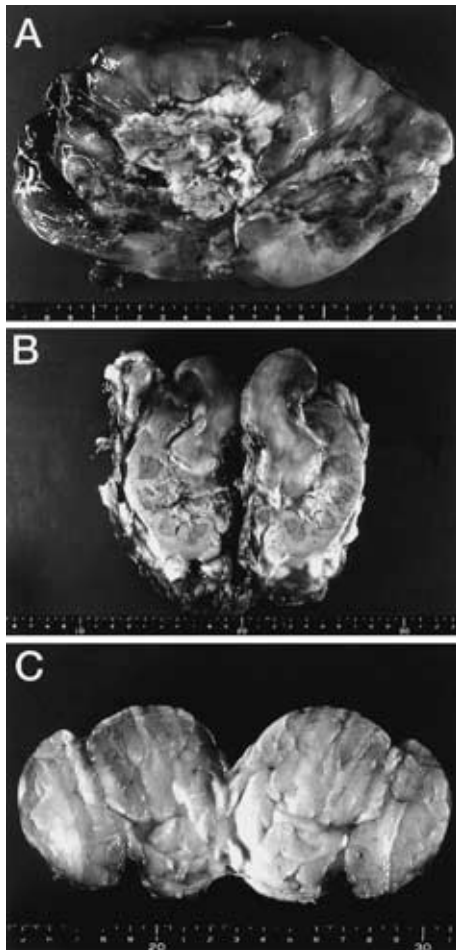


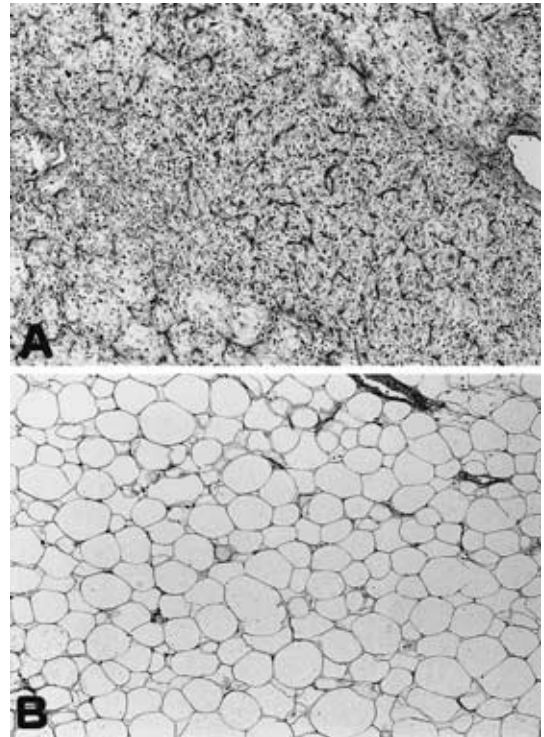
Fig. 3 Resected specimen : (A) The tumor on the ventral side of the left kidney was 20.5 cm in maximum diameter and 2,400 g in weight. The tumor was elastic hard and mostly gray in color, while the center was yellowish-white. (B) The tumor located between the rostral end and the hilus of the left kidney was elastic hard and gray in color. (C) The tumor in the sigmoid colon mesentery was elastic soft and yellow in color.



左腎の腹側から腎門にある腫瘍を左腎とともに摘出した。これらの腫瘍の連続性はなかった。また、画像診断にて左腎の腹側の腫瘍の一部が脂肪であると判断した部分はS状結腸間膜に存在する独立した腫瘍であり、これも摘出した。これは肉眼的に脂肪腫であった。

摘出標本所見：左腎腹側の腫瘍は、最大径20.5cm、重さ2,400gであった。弾性硬で、断面は主に灰白色で

Fig. 4 Histologic findings : (A) Histopathological examination of the retroperitoneal tumor on the ventral side of the left kidney revealed a proliferation of spindle or stellate cells, abundant capillaries in the stroma, and myxoid matrix. (B) The tumor in the sigmoid colon mesentery was composed of mature adipose tissue. (A, B : H. E. $\times 100$)



中心に黄白色の部分をも認めた (Fig. 3A) . 左腎の頭側から腎門にかけて存在した腫瘍は、弾性硬で、断面は灰白色であった (Fig. 3B) . S状結腸間膜の腫瘍は弾性軟、黄色であった (Fig. 3C) .

病理組織検査：2個の後腹膜腫瘍の病理組織は同様に、紡錘形や星芒状の脂肪芽細胞が増殖し、間質に毛細管、粘液状基質が認められた。粘液型の脂肪肉腫と診断した (Fig. 4A) . 左腎腹側の腫瘍は中心部に壊死組織が認められた。S状結腸間膜腫瘍の病理組織は成熟した脂肪組織であり、脂肪腫と診断した (Fig. 4B) .

術後経過は良好で術後第15病日に退院した。術後1年10か月で左上腹部の前回摘出部に局所再発を認めため摘出術を行った。その後6か月を経過し、外来で観察中である。

考 察

脂肪肉腫において、CT像は分化したものではCT値は脂肪濃度となり、未分化なものでは著明な造影効果を認める軟部組織濃度を呈することが報告されている³⁾。腫瘍内に脂肪濃度を認めれば術前に脂肪肉腫を疑うことも可能であり、本症例も腫瘍内に脂肪の部分を認めると判断して脂肪肉腫と術前診断した。実際には脂肪肉腫である2個の腫瘍と脂肪腫である1個の腫瘍からなっていた。

脂肪肉腫は通常単発の腫瘍であるが、多発した腫瘍では転移であるのか多中心性発生であるのかが問題となる。転移よりも多中心性に発生したと考えられる脂肪肉腫の症例がSiegmond¹⁾、Ackerman²⁾などによって報告され、彼らは全身の脂肪組織を単一の臓器と捉え、その中で系統的に悪性腫瘍が発生する考えを述べている。多中心性に発生した脂肪肉腫と考えられる病変は、1) 原発性脂肪肉腫の好発部位である大腿、膝窩、後腹膜、腹腔、上肢、胸膜に存在していて、転移の好発部位である肺、肝臓、骨に病変のみられないもの、2) 組織型が他臓器転移をきたすことが少ない分化型、粘液型であるもの、3) 異時性に発生した場合は間隔が長期間のもの、4) 脂肪腫が存在するものなどと報告されている^{1,2,3,4,6)}。脂肪腫を合併した脂肪肉腫では、脂肪組織への腫瘍形成の刺激が、ある部位では脂肪腫の発生へ、他の部位では脂肪肉腫の発生へつながったものと考えられている^{7,8)}。本症例は後腹膜に存在し、組織型が粘液型脂肪肉腫で、脂肪腫を合併しており、これまでに報告された多中心性に発生した脂肪肉腫の概念に一致していたので多中心性発生と考えた。しかし、多中心性に発生した脂肪肉腫の診断は、明確な診断基準が確立されておらず、転移との厳密な区別は困難であり、本症例についても転移の可能性を否定することは困難である。

脂肪肉腫は通常単発の腫瘍であり、同時に原発巣が多発していると考えられる症例はまれで、41例中1例(2.4%)⁹⁾、105例中2例(1.9%)¹⁰⁾と報告されているが、多数例の検討(122例⁴⁾、136例¹¹⁾)で1例も認めない報告もある。本邦で多発例の報告は、われわれが検索しえた範囲で4例¹²⁾⁻¹⁵⁾のみであった。脂肪腫の合併した多発例は外国例³⁾では報告されているが、本邦では本症例のみであった。

脂肪肉腫の治療は放射線治療^{4,9,16)}、化学療法¹⁶⁾⁻¹⁸⁾とともに効果が不良な報告が多く、切除が第1選択とされている。複数の腫瘍がある場合、多中心性発生であっ

ても転移であっても可能ならばそれぞれの切除が第1選択と考えられる。しかし、上下肢に発生した場合の切断の適応については、転移の有無を含めた総合的な判断が必要との指摘¹⁰⁾もあり、多発した脂肪肉腫を認めた場合、念頭に置くべき概念と考えられた。

文 献

- 1) Siegmund H : Lipoblastische Sarcomatose . Virchows Arch 293 : 458 463, 1934
- 2) Ackerman LV : Multiple primary liposarcomas. Am J Pathol 20 : 789 793, 1944
- 3) 早川和正, 斉藤泰博, 杉江広紀ほか : 脂肪肉腫のCT . 日医放線会誌 45 : 1517 1520, 1985
- 4) Kindblom LG, Angervall L, Svendsen P : Liposarcoma. A clinico-pathologic, radiographic and prognostic study. Acta Pathol Microbiol Scand Section A [study] 253 : 1 71, 1975
- 5) Georgiades DE, Alcalais CB, Karabela VG : Multicentric well-differentiated liposarcomas. Cancer 24 : 1091 1097, 1969
- 6) Seenu V, Kriplani AK, Shukla NK et al : Multicentric liposarcoma : report of two cases. Surg Today 25 : 447 450, 1995
- 7) Starkloff GB, Saxton JA, Johnson RE : Liposarcoma of an extremity associated with multiple multiple subcutaneous lipomas. Ann Surg 133 : 261 266, 1951
- 8) Barkhof F, Melkert P, Blomjous CE : Derangement of adipose tissue. A case report of multicentric retroperitoneal liposarcomas, retroperitoneal lipomatosis and multiple subcutaneous lipomas. Eur J Surg Oncol 17 : 547 550, 1991
- 9) Stout AP : Liposarcoma-the malignant tumor of lipoblasts. Ann Surg 119 : 86 107, 1944
- 10) Pack GT, Pierson JC : Liposarcomas. a study of 105 cases. Surgery 36 : 678 712, 1954
- 11) 田中雅祐, 檜沢一夫, 藤内 守 : 脂肪肉腫136例の臨床病理学的研究 . 癌の臨 20 : 1036 1047, 1986
- 12) 香川 潔, 増田 興, 田中一穂ほか : 縦隔, 後腹膜, 胃漿膜下に多中心性発生を来した脂肪肉腫の1手術例 . 日胸外会誌 34 : 897 902, 1986
- 13) 日高 充, 下田雅美, 伊藤 薫ほか : 多中心性脂肪肉腫の頸椎発生例 . CT 研究 13 : 183 187, 1991
- 14) 陳 尚顯, 柴田興彦, 安永 昭 : 多発性後腹膜脂肪肉腫 . 大分県医会誌 10 : 85 88, 1991
- 15) 上岡弘明, 鳥山正人, 徳橋泰明ほか : 多中心性脂肪肉腫の1例 . 関東整災誌 25 : 449 452, 1994
- 16) 伊崎寿之, 花岡英彌, 矢部啓夫ほか : 脂肪肉腫の臨床病理学的検討と治療成績 . 整形外科 45 : 409 415, 1994
- 17) Kinne DW, Chu FCM, Huvos AG et al : Treatment of primary and recurrent retroperitoneal

liposarcoma. Cancer 31 : 53-64, 1973
18) Presant CA, Lowenbraun S, Bartolucci AA et al :
Metastatic sarcomas : Chemotherapy with adria-

mycin, cyclophosphamide, and Methotrexate al-
ternating with actinomycin D, DITC, and vincris-
tine. Cancer 47 : 457-465, 1981

A Case of Retroperitoneal Liposarcomas of Multicentric Origin

Naoki Futamura, Atsuyoshi Onitsuka, Masatomo Hayashi, Masaya Shibata, Ken-ichi Sakamoto,
Mikio Yasumura, Hajime Hirose and Kuniyasu Shimokwa*
First Department of Surgery and Department of Laboratory Medicine*,
Gifu University School of Medicine

We report a case of retroperitoneal liposarcomas of probably multicentric origin with a lipoma in the sigmoid colon mesentery. A 57-year-old male underwent abdominal ultrasonography in September 1996. Mass lesions were detected in the left upper abdomen. Abdominal ultrasonography, CT and MRI demonstrated 2 mass lesions : one on the ventral side of the left kidney and one between the rostral end and the hilus of the left kidney. It was suggested that the tumor on the ventral side of the kidney was associated with adipose tissue. Surgery was performed under the preoperative diagnosis of liposarcoma. Two mass lesions in the retroperitoneum were confirmed during surgery : one on the ventral side of the left kidney and one between the rostral end and the hilus of the left kidney. The adipose tissue suggested by the imaging study proved to be an independent tumor located in the sigmoid colon mesentery. Pathological examination showed that the two mass lesions in the retroperitoneum were myxoid liposarcomas, while the tumor in the sigmoid colon mesentery was a lipoma. We considered that the retroperitoneal liposarcomas with the lipoma were of multicentric origin.

Key words : multicentric liposarcoma retroperitoneal liposarcoma

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 225-229, 2000]

Reprint requests : Naoki Futamura Department of Surgery, Hashima City Hospital
3-246 Shinsei-cho, Hashima, 501-6206 JAPAN
