

後腹膜脂肪肉腫再発の1例

早崎碧泉, 藤井幸治, 楠田 司, 松本英一, 熊本幸司, 山岸 農

伊勢赤十字病院 外科

A CASE OF RECURRENT RETROPERITONEAL LIPOSARCOMA

Aoi HAYASAKI, Koji FUJII, Tsukasa KUSUTA,

Eiichi MATSUMOTO, Koji KUMAMOTO, Takashi YAMAGISHI

Department of surgery, Ise Red Cross Hospital

要 旨

症例は50歳男性。約1年前に他院で右後腹膜脂肪肉腫摘出術を施行された。径13cmの高分化脂肪肉腫であった。今回、外来通院中に腹部単純造影CTで同部に局所再発を認めたため当院へ紹介された。CTにて右後腹膜に約8cmの石灰化を伴い不均一に造影される腫瘤を認めた。腫瘤は右尿管を圧排し右尿管拡張・右水腎症を伴っており、また十二指腸・右腸腰筋・下大静脈も圧排していた。後腹膜脂肪肉腫再発の診断で開腹し、右腎下極の後腹膜腫瘤の他に肝腎境界に2cmの娘結節を認めた。右腎・右尿管・回腸・虫垂・肝部分合併後腹膜腫瘤摘出術を施行した。組織学的に、右腎下極の腫瘤は脱分化脂肪肉腫、肝腎境界の娘結節は高分化脂肪肉腫であった。後腹膜脂肪肉腫の再発症例につき、その特徴を検討した。

索引用語：後腹膜脂肪肉腫、再発、脱分化

Key Words: retroperitoneal liposarcoma, recurrence, dedifferentiation

はじめに

後腹膜脂肪肉腫は後腹膜悪性腫瘍の14.7%と最多である¹⁾。その予後規定因子は初診時遠隔転移の有無と根治手術の成否と報告されており²⁾、治療は外科的完全切除が第一選択である。しかし、無症状で増大して大血管や腎など重要臓器に近接することが多いこと、また組織学的に偽被膜であることなどより、完全切除率は低く局所再発率は高い³⁾。また、再発過程において脱分化して悪性度を増す症例も報告されている⁴⁾。今回我々は高分化脂肪肉腫の初回治療後約1年で脱分化脂肪肉腫として再発した症例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：50歳男性

主訴：特になし

既往歴：特になし

現病歴：約1年前に他院で右後腹膜脂肪肉腫摘

出術を施行された。後腹膜脂肪肉腫は上行結腸・十二指腸下行脚・水平脚、右腎・右尿管に接していたが、周囲臓器合併切除はされなかった。径13cmの高分化脂肪肉腫であった。今回、外来通院中にCTで同部に局所再発を認め当院へ紹介された。

入院時現症：身長172cm、体重65kg。右上腹部に可動性不良の約5cmの腫瘤を触知した。

血液検査：BUN 15 mg/dl、Cr 1.26 mg/dlと軽度腎機能低下を認めた。

腹部造影CT検査：右後腹膜腔に約8cmの腫瘤を認めた。筋よりも低吸収で石灰化を伴い、内部は不均一に造影された。右尿管は腫瘤により圧排され、右尿管拡張・右水腎症を伴っていた。また、十二指腸・右腸腰筋・下大静脈を圧排していた(図1)。

注腸造影検査：上行結腸から横行結腸が内側に偏位していた(図2)。

以上より後腹膜脂肪肉腫再発の診断で、右腎・右尿管・右半結腸合併後腹膜脂肪肉腫摘出術を予

定した。

手術所見：右腎下極後腹膜腔に約 8 cm の腫瘤 (A) を認めた。上縁は十二指腸水平脚に近接しており、腫瘍下縁は回腸・虫垂へ浸潤、内側は下大静脈に近接、背側では右尿管に浸潤していた。また、肝腎境界に腫瘤 (A) とは連続しない約 2 cm の娘結節 (B) を認めた。完全切除とするため十二指腸漿膜ごと剥離し、漿膜欠損部は漿膜筋層縫合閉鎖し、回腸・虫垂・右腎・右尿管・肝部分合併後腹膜脂肪肉腫摘出術を施行した。

病理組織学的所見：8.0×6.0×6.0 cm の後腹膜腫瘤 (A) と 2.0×1.5 cm の肝腎境界の腫瘤 (B) を認めた (図 3)。腫瘤 (A) は、膠原線維の増

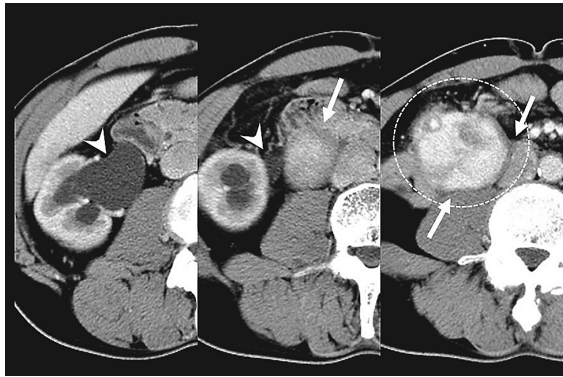


図 1 右後腹膜に約 8 cm の腫瘤を認めた (点線)。筋よりも低吸収で石灰化を伴い、内部は不均一に造影された。右尿管は腫瘤により圧排され右尿管拡張・右水腎症を伴っていた (矢頭)。また、十二指腸・右腸腰筋・下大静脈を圧排していた (矢印)。



図 2 上行結腸から横行結腸が内側に偏位していた。

生、紡錘形の肉腫様細胞が束状に増殖、また多核細胞もあり脱分化脂肪肉腫と診断された (図 4)。腫瘤 (B) は、脂肪芽細胞を含む大小不同の脂肪組織に腫瘍性異型細胞を伴う線維増加を認め、高分化脂肪肉腫と診断された (図 5)。

術後経過：術後合併症なく経過し、術後 12 日目に退院した。現在、術後 6 カ月で無再発生存中である。

考 察

後腹膜腫瘍の頻度は全腫瘍の約 0.2% であり、70–80% が悪性と報告されている⁵⁾。そのうち脂肪肉腫は 14.7% と最多であり、悪性リンパ腫、平滑筋肉腫と続く²⁾。後腹膜脂肪肉腫は脂肪組織由来の後腹膜悪性腫瘍で、40–60 歳に好発する。無症状で発育し、増大に伴う腫瘤触知や腹部膨満

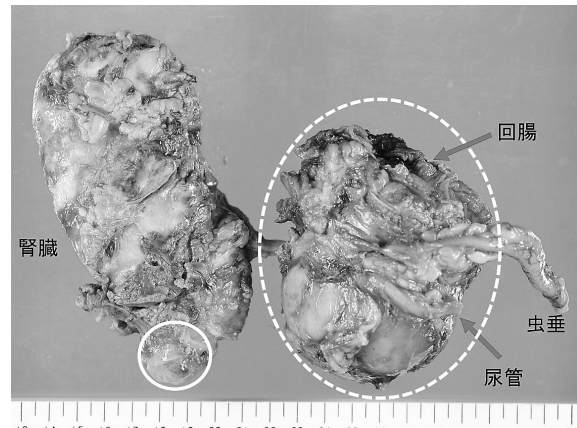


図 3 8.0×6.0×6.0 cm の後腹膜腫瘤 A (点線) と 2.0×1.5 cm の肝腎境界の腫瘤 B (実線) を認めた。

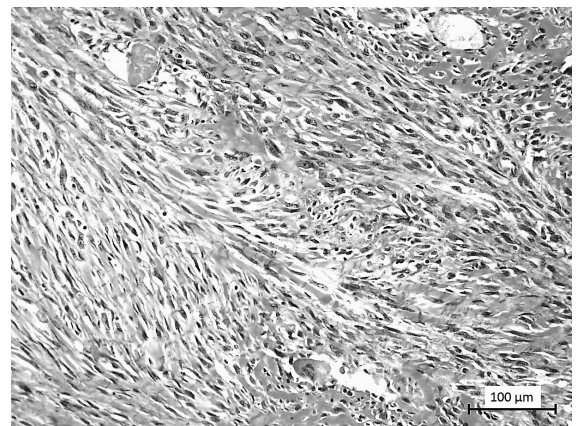


図 4 HE×400。腫瘤 A は、膠原線維の増生、紡錘形の肉腫様細胞が束状に増殖、また多核細胞もあり脱分化脂肪肉腫と診断された。

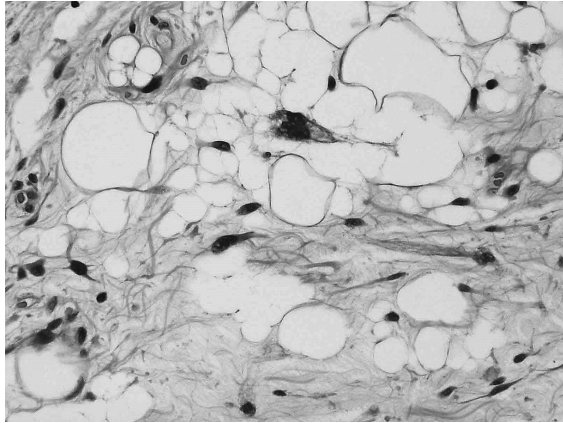


図5 HE×400. 腫瘍Bは、脂肪芽細胞を含む大小不同の脂肪組織に腫瘍性異型細胞を伴う線維増加を認め、高分化脂肪肉腫と診断された。

感などで発見されることが多く、石部ら⁶⁾は腫瘍最大径は平均 23.7 cm, 腫瘍重量は平均 4.7 kg と報告している。

WHO 2003 では、組織型は高分化、脱分化、粘液型、多形型、混合型の 5 種類に分類されており、藤井ら⁷⁾はそれぞれの割合を 43.2%, 34.6%, 9.9%, 3.7%, 8.6%であったと報告している。

治療は外科的完全切除が第一選択である。しかし、その解剖学的特徴から巨大化して大血管や腎など重要臓器に近接して見つかることが多く、また被膜が腫瘍細胞から成るいわゆる偽被膜であり、被膜外に浸潤しやすく周囲脂肪織との境界が不明瞭であるという組織学的特徴などから、完全摘出率は 12–32%と低く⁸⁾、再発率は 30–80%とされている⁹⁾。再発形式としては、高分化・粘液型では局所再発がほとんどであり 5 年生存率は 75–85%、脱分化・多形型では遠隔転移もみられ、5 年生存率は 20%前後と言われる¹⁰⁾。

今回我々は、医学中央雑誌にて「後腹膜脂肪肉腫」「再発」(会議録除く 1983–2013)をキーワードに検索し、詳細な記載のある 50 例を検討した(表 1)。年齢は 29–84 歳(平均 58.4 歳)、男性 27 例・女性 23 例と男女差なく、腫瘍径は 5.5–48 cm(平均 21.3 cm)、重量は 490–4800 g(平均 3970 g)と後腹膜脂肪肉腫全般の統計と大差を認めない。組織型は後腹膜脂肪肉腫全般の統計⁷⁾では高分化が 43.2%と最多であるのに対し、再発をきたした後腹膜脂肪肉腫症例の初発時組織型では、脱分化 36%、高分化 30%、粘液型 12%、

表 1 後腹膜脂肪肉腫再発 50 症例
(会議録除く, 1983–2013)

	後腹膜脂肪肉腫 87 例(藤井ら ⁷⁾)	再発後腹膜脂肪肉腫 50 例
年齢	29–84 歳 平均 60.6 歳	29–84 歳 平均 58.4 歳
性差	男性 42 女性 45	男性 27 女性 23
腫瘍径	5.5–44 cm 平均 18.6 cm	5.5–48 cm 平均 21.3 cm
重量	130–18000 g 平均 3623 g	490–4800 g 平均 3970 g
組織型	高分化 43.2% 脱分化 34.6% 粘液型 9.9% 混合型 8.6% 多形型 3.7%	高分化 30% 脱分化 36% 粘液型 12% 混合型 14% 多形型 2%

混合型 14%、多形型 2%、記載なし 6%で、脱分化が多かった。

再発形式では 2 例を除いたほぼ全例が局所再発している。最終的に遠隔転移をきたしたものは 6 例で肺、肝、腋窩リンパ節、縦隔、胸壁などへの転移であった。遠隔転移をきたした症例の初発時組織型は粘液型 2 例、脱分化 2 例、高分化 1 例、混合型 1 例であり、岩崎ら¹⁰⁾の報告とはやや傾向が異なっていた。Marinello ら¹¹⁾は、後腹膜脂肪肉腫症例の死亡時には 70%が遠隔転移を伴わず局所再発のみを認めていたことから、局所コントロールを重用視し、外科的完全切除のため隣接臓器を犠牲にする en block 切除をすべきと主張している。今回の検討で、初発時に他臓器合併切除を施行した症例は 27 例(54%)あったが、それでも尚再発の経過をたどっていた。再発時手術でも 20 例(40%)で周辺臓器の合併切除が施行されていたが、3 回以上再発したものは 30 例(60%)あり、完全切除・断端評価の難しさを示している。谷口ら¹²⁾は根治切除が施行された症例を、無再発群、再発切除群、再発非切除群に分けて生存率を検討し、再発切除群は再発非切除群に比べて有意に予後良好であったことから、術後再発をきたしても再切除が可能なら良好な予後が得られるとしている。実際、再発を繰り返しながらも初発時から 20 年以上で無再発長期生存している症例もみられる^{13, 14)}。一方で、明確な診断基準はないものの多中心性発生の概念があり^{15, 16, 17)}、多発例や再発例では同時性転移・異時性転移・多

中心性発生いずれの可能性も考えられ、経過観察の上ではこの点でも注意が必要である。

脱分化脂肪肉腫は高分化脂肪肉腫から非脂肪性肉腫への移行を示す悪性脂肪性腫瘍であり、原発性が90%、続発性が10%である¹⁰⁾。後腹膜脂肪肉腫の20%に生じると言われており¹³⁾、本症例のように再発過程で脱分化を生じた症例報告は散見される。Henricksら¹⁸⁾は脱分化までの期間は平均7.7年で、脱分化脂肪肉腫の局所再発率は41%、転移率は17%、5年生存率は28%、分化型と比較すると死亡リスクは6倍で予後不良と報告している。今回の再発症例の検討では、報告期間内に脱分化を認めたものは記載のあるもので7例(14%)であり、脱分化までの期間は6カ月から17年(平均5.47年)であった。

再発をきたした後腹膜脂肪肉腫の初発時組織型と再発時期の関係を検討したところ、6カ月未満に再発した7例中では4例(57.1%)、6カ月以上1年未満に再発した8例中では5例(62.5%)が脱分化と多かった。一方、5年以上で再発した10例では6例(60%)が高分化と多かった。再発までの平均月数は脱分化で21カ月、高分化で61カ月であり、脱分化では術後早期の再発が多く、高分化では術後長期経過してからの再発が多い傾向にあった(図6)。このことより、脱分化では術後早期から頻回の定期画像検査が必要と考えられる。本症例においても、3カ月毎の定期検査を継続中である。

再発時に脱分化をきたした後腹膜脂肪肉腫の一例を経験した。初発時組織型や経過中での組織型の変化に注意しながら対応する必要がある。

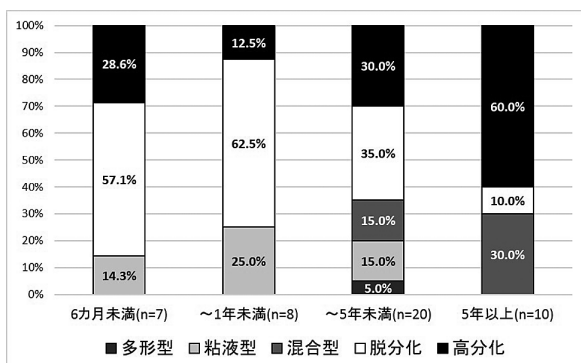


図6 再発をきたした後腹膜脂肪肉腫の初発時組織型と再発時期の関係

文 献

- 朝長毅, 奥山和明, 長尾孝一, 田畑陽一郎, 榎本和夫, 高在完, 日浦利明, 佐藤博, 磯野可一. 多彩な組織像を有する後腹膜脂肪肉腫の1治験例. 癌の臨. **32**: 927-932 (1986)
- Stoeckle E, Coindre JM, Bonvalot S, Kantor G, Terrier P, Bonichon F, Nguyen Bui B. Prognostic factors in retroperitoneal sarcoma: a multivariate analysis of a series of 165 patients of the French Cancer Center Federation Sarcoma Group. *Cancer*. **92**: 359-368 (2001)
- 三澤良輔, 藤森芳朗, 五十嵐淳, 宮本英雄, 西村博行. c-kit 陽性細胞を含有した巨大後腹膜脂肪肉腫の1例. 日臨外会誌. **68**: 2631-2636 (2007)
- 鈴木紳祐, 森隆太郎, 簾田康一郎, 長谷川誠司, 江口和哉, 仲野明. 複数回切除により長期生存中の後腹膜原発脱分化型脂肪肉腫の1例. 日臨外会誌. **72**: 505-509 (2011)
- Armstrong JR, Cohn I Jr. Primary malignant retroperitoneal tumors. *Am J Surg*. **110**: 937-943 (1965)
- 石部敦士, 黒澤治樹, 小松茂治, 鬼頭文彦, 福島恒男, 中村宣生. 巨大後腹膜脂肪肉腫の1例. 臨外. **60**: 389-393 (2005)
- 藤井幸治, 種村彰洋, 松本英一, 高橋幸二, 宮原成樹, 楠田司. 短期間に再発を繰り返した後腹膜脂肪肉腫の1例. 手術. **64**: 135-140 (2010)
- 浦川雅巳, 池野龍雄, 名取恵子, 斎藤拓康, 宮本英雄, 川口研二. 急激な進行にて死に至ったS状結腸間膜脂肪肉腫の1例. 日臨外会誌. **70**: 1217-1221 (2009)
- 安部哲也, 高勝義, 片山信, 小倉豊, 日比野茂. 孤立性腹膜転移を契機に発見された後腹膜脂肪肉腫の1例. 日臨外会誌. **62**: 2298-2302 (2001)
- 岩崎宏. 脂肪性腫瘍-特に異型脂肪腫様腫瘍と脱分化脂肪肉腫の多様性について-. 病理と臨. **22**: 120-126 (2004)
- Marinello P, Montresor E, Iacono, Bortolasi L, Acerbi A, Facci E, Martignoni G, Brunelli M, Mainente M, Serio G. Long term results of aggressive surgical treatment of primary and recurrent retroperitoneal liposarcomas. *Chir Ital* **53**: 149-157 (2001)
- 谷口哲也, 牧野正人, 貝原信明. 後腹膜脂肪肉腫の3例. 日臨外医会誌. **58**: 1117-1121 (1997)
- 久志一郎, 比嘉昇, 饒平名知史, 河崎英範, 川畑勉, 国吉真行, 石川清司. 再発性巨大後腹膜脂肪

- 肉腫の1切除例. 沖縄病院医誌. 31 : 49 - 51 (2011)
- 14) 香川潔, 増田與, 田中一穂, 辰巳明利, 野々山明, 香川輝正. 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)
- 15) 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. 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. 日消外会誌. 33 : 225 - 229 (2000)
- 16) 中尾圭介, 玄東吉, 染野泰典, 宇田川勝, 岡本浩之, 稲留征典. 左鼠径部腫瘤として発症した腹腔内および後腹膜多発脂肪肉腫の1例. 日臨外会誌. 73 : 2691 - 2695 (2012)
- 17) Henricks WH, Chu YC, Goldblum JR, Weiss SW. Dedifferentiated liposarcoma : a clinicopathological analysis of 155 cases with a proposal for an expanded definition of dedifferentiation. Am J Surg Pathol. 21 : 271 - 281 (1997)