

診 療

婦人科悪性腫瘍が疑われた後腹膜線維症の2例

横浜市立大学医学部産婦人科学教室

宇田川香織 宮城 悦子 平原 史樹
 白須 和裕 山中美智子 中山 昌樹
 高橋 恒男 多賀 理吉 水口 弘司

Two Cases of Retroperitoneal Fibrosis Diagnosed Preoperatively as Gynecological Malignant Tumors

Kaori UDAGAWA, Etsuko MIYAGI, Fumiki HIRAHARA,

Kazuhiro SHIRASU, Michiko YAMANAKA, Masaki NAKAYAMA,

Tsuneo TAKAHASHI, Michiyoshi TAGA and Hiroshi MINAGUCHI

Department of Obstetrics and Gynecology, Yokohama City University School of Medicine, Yokohama

Key words: Retroperitoneal fibrosis • Case report

緒 言

後腹膜線維症は、1948年に Ormond¹⁾が初めて2例を報告した、比較的稀な疾患である。従来の報告例の多くは、泌尿器科領域からのものであるが、今回我々は、婦人科領域の悪性腫瘍が強く疑われ、術前診断が困難であった後腹膜線維症の2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1: 51歳, 女性, 3妊2産。

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 39歳, 高血圧を指摘され, 以後内服治療中。49歳, 顎下腺腫瘍摘出術。

月経歴: 初経14歳, 30日周期, 順, 未閉経。

現病歴: 1986年4月, 食欲不振, 悪心, 嘔吐が出現し, 近医を受診したところ, 子宮筋腫が疑われ, 当科を紹介受診した。内診上, 右付属器及び子宮左壁に鶏卵大の硬い腫瘍を触知し, 両側卵巢腫瘍の診断で手術目的にて入院となった。検査所見では, 血沈が80mm/hrと亢進し, BUN 166mg/dl, Cr 18.9mg/dl, K 5.0mEq/lと腎不全徴候を認め, 腫瘍マーカーはTPA 880u/ml, IAP 1,055 µg/mlと上昇し, 一方, CA125 26u/ml, CA19-9 45u/mlとほぼ正常値を示した。腹部・骨盤CT検

査で, 直腸の前方及び右側に不整形の腫瘍像(写真1)及び腫瘍の圧迫によると考えられる両側水腎症を認めた。

手術所見: 子宮及び両側付属器に肉眼的には異常を認めなかったが, 近傍の左外腸骨動脈に沿い, 灰白色, 弾性硬の紡錘形の腫瘍があり, 右内腸骨動脈及び右尿管周囲にも硬結を認めた。悪性腫瘍を強く疑い, 病変部の組織生検と, 単純子宮全摘術及び両側付属器摘出術を施行した。

術後経過: 術中生検組織像より, 後腹膜線維症と診断し, プレドニゾロン30mg/dayより経口投与を開始した。現在に至るまで再燃寛解をくり返し, 経過観察中である。

病理組織学的所見: 外腸骨リンパ節周囲の間質組織に, 器質化した膠原線維を主体とした病変の中に, 炎症細胞浸潤が散在性に認められた(写真2A)。

症例2: 50歳, 女性, 3妊1産(帝王切開術)。
 家族歴: 父, 兄が胃癌による胃切除術。

既往歴: 18歳, 虫垂炎による虫垂切除術。

月経歴: 初経14歳, 28日周期, 順, 未閉経。

現病歴: 1992年1月, 発熱, 腰痛が出現し, 3月には食欲不振, 体重減少, 便秘も出現したため



写真1 症例1の術前骨盤CT像。直腸前方及び右側に不整形の腫瘍像(▲)を認める。

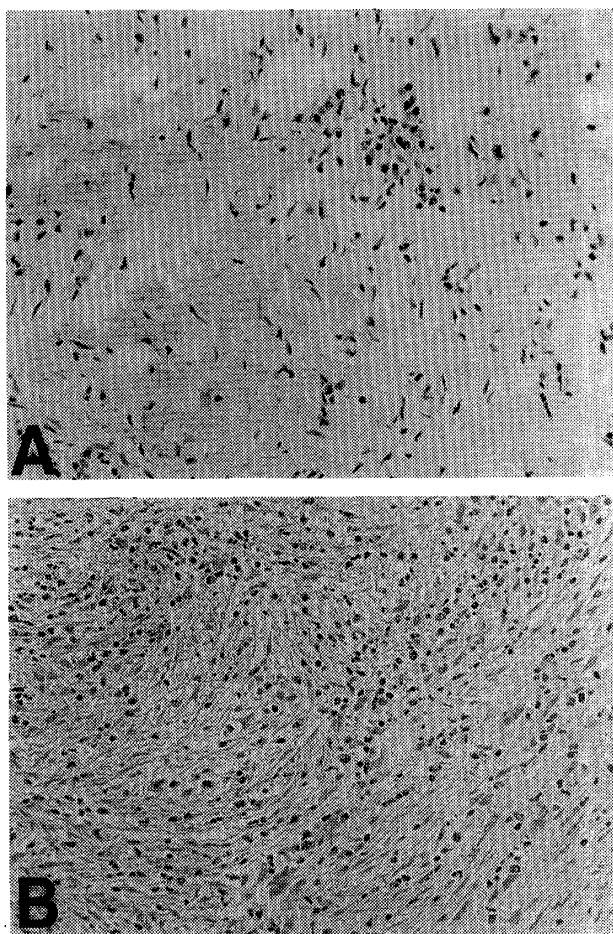


写真2 後腹膜生検組織像(HE染色, $\times 200$)。
A: 症例1. 慢性期の組織像を呈する。B: 症例2. 亜急性期の組織像を呈する。

近医受診, 左下腹部に腫瘍を認め, 当科を紹介受診した。内診上, 手拳大の子宮を触知し, 子宮筋腫の診断で手術目的にて入院となった。検査所見では, 白血球 $10,400/\text{mm}^3$, CRP 5.5mg/dl , 血沈 100mm/hr と炎症所見を認め, 腫瘍マーカーは, IAP $1,010\mu\text{g/ml}$ と高値を示したが, CA125, CA19-9, TPA はそれぞれ 19u/ml , 18u/ml , 35u/ml と正常値を示した。下部消化管造影検査では, S状結腸部に狭窄を認めた。入院後の内診所見では, 左付属器近傍に広汎な硬性腫瘍様抵抗を触知し, 骨盤CT及びMRI検査(写真3A)でも, 子宮左側に約 3cm 大の腫瘍像を認めた。さらに, ガリウム(Ga)シンチ検査で, 左骨盤内にRIの異常集積像が認められ(写真4A), 手術直前には悪性卵巣腫瘍が強く疑われた。

手術所見: 子宮及び右卵巣には異常を認めなかったが, 左付属器部位が鶏卵大に腫大し, S状結腸と強く癒着していた。後腹膜全体も硬化し, 展開が困難な状態であった。病変の一部を生検し, 迅速病理診断を行い, これらの所見より, 後腹膜線維症と診断した。S状結腸への病変波及を考慮し横行結腸に人工肛門を造設し, 閉腹した。

術後経過: プレドニゾロン 30mg/day より経口投与を開始し, 5mg/day で6カ月間維持した。現在は投薬を中止し, 経過観察中である。加療後, 骨盤CT像, MRI像, Gaシンチ像の異常所見は,

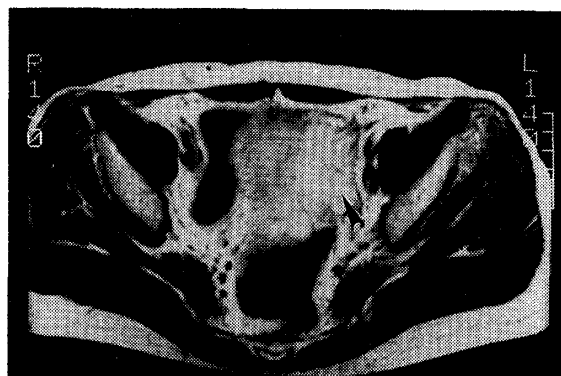
A**B**

写真3 症例2の骨盤MRI像(T1強調画像)。治療前(A)は子宮の左側に約3cm大の腫瘤像(▼)を認めるが、治療後(B)は消失した。

すべて消失した(写真3B, 4B)。

病理組織学的所見：左付属器周囲に、高度の細胞浸潤と、一部に膠原線維の増生を認めた(写真2B)。

考 察

後腹膜線維症は、後腹膜を中心とした線維脂肪組織の非特異的炎症で、線維化の進行と共に管腔臓器を圧迫し、種々の症状を呈する。病因として、薬剤、後腹膜腔への出血及び尿の漏出による反応性のもの、感染、放射線、動脈瘤、悪性腫瘍に随伴するもの²⁾などが推定されているが、2/3は原因不明の特発性であり、自己免疫疾患の一つであるという説が有力である³⁾。欧米では20万人に1例の頻度で、発症平均年齢は50歳代、男女比は2:1で男性に多いとされている²⁾。主な症状としては、腹痛、食欲不振、嘔吐などの消化器症状、全身倦怠感、微熱など多彩であり、進行例では圧迫する臓器により、尿閉、水腎症、浮腫、腸閉塞、下肢の壊阻などを認める。血液検査では、白血球増加、血沈亢進などの炎症所見を認める。確定診断は試験開腹術と線維化腫瘤の生検によるが、術前の画像診断で有用なものとしては、超音波、CT、MRI、IVP、Gaシンチ等が挙げられる^{4)~7)}。肉眼所見では、大動脈周囲リンパ管に沿って斑紋状木様の白色線維組織として認められる。病理組織学的所見では、病期により、炎症細胞浸潤を主体とする急性～亜急性期像から、完全な硝子化、硬化性病変を呈する慢性期像までさまざまである⁸⁾。症例1では、細胞浸潤よりも線維化を主体とした慢性期に相当し、症例2では、炎症細胞浸潤を主体とした亜急性期であると考えられた。本症により

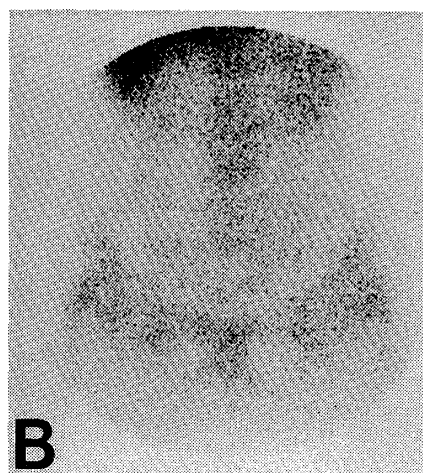
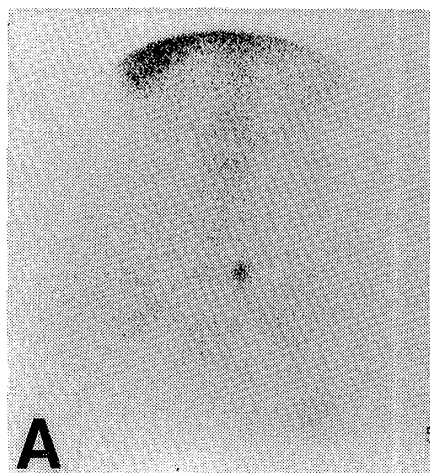


写真4 症例2のガリウムシンチ像。治療前(A)のRI異常集積像が、治療後(B)は消失した。

線維化した腫瘍は、超音波では辺縁整の echo free space として、CT では筋肉とほぼ同じ density の soft tissue mass として描出され、Ga シンチでは集積像として認められる。一方、MRI においては、T1強調画像では low～median intensity に、T2では、炎症期には high に、慢性期には low に描出される。さらに、炎症期では Gd-DPTA により造影されるが、内部が比較的均一な点で悪性腫瘍とは区別される⁶⁾。このように質的診断において、MRI は他の画像診断よりもその鑑別に有用であると思われる。治療としては、ステロイド療法が有効とされている⁹⁾。本症は第4腰椎～第5腰椎付近の後腹膜を好発部位とし、尿管狭窄による症状が初発であることが多い。しかし、今回の2症例は主病変が骨盤内にあり、内診上、子宮又は卵巣の腫瘍として、あるいは子宮傍組織の固い抵抗として触知されたため、婦人科的疾患、特に悪性腫瘍が強く疑われ、諸検査等では特異的所見が認められず、術前診断が困難であった。今後、このような症例に遭遇した場合は、後腹膜線維症という疾患を鑑別疾患として念頭に置き、診断、治療を進める必要があると考えられた。

稿を終えるにあたり、御指導いただいた、横浜市立大学放射線科永瀬みゆき先生、ならびに同病院病理部稲山嘉明先生、上里雅史先生に深く感謝いたします。

文 献

1. Ormond JK. Bilateral ureteral obstruction due to envelopment and compression by an inflammatory retroperitoneal process. J Urol 1948; 59: 1072—1079
2. Koep L, Zuidema GD. The clinical significance of retroperitoneal fibrosis. Surgery 1977; 81: 250—257
3. Hohhman WW, Trippel OH. Retroperitoneal fibrosis: Etiologic considerations. J Urol 1981; 86: 222—231
4. Sanders RC, Duffy T, McLoughlin MG. Sonography in the diagnosis of retroperitoneal fibrosis. J Urol 1977; 118: 944—946
5. Dalla-Paima L, Rocca-Rossetti S, Pozzi-Mucelli RS, Rizzato G. Computed tomography in the diagnosis of retroperitoneal fibrosis. Urol Radiol 1981; 3: 77—83
6. Yuh WTC, Barloon TJ, Sickels WJ, Kramolowsky EV, Williams RD. Magnetic resonance imaging in the diagnosis and follow-up of idiopathic retroperitoneal fibrosis. J Urol 1989; 141: 602—605
7. Liebman R. Positive gallium scan in retroperitoneal fibrosis. AJR 1983; 141: 949—950
8. Abercrombie GF. Retroperitoneal fibrosis. Practical problem in management. Brit J Urol 1980; 52: 443—445
9. Higgins PM, Bennett-Jones DN, Naish PF, Aber GM. Nonoperative management of retroperitoneal fibrosis. Br J Surg 1988; 75: 573—577

(No. 7455 平5・11・5受付)