

診 療

出生前超音波検査により診断された Congenital Mesoblastic Nephroma (CMN) の 1 例

久留米大学医学部産婦人科学教室

徳田 諭道 堀田 正英 池田 雅紀
田辺紀和子 本田志寿恵 宮嶋 諭
佐藤 典生 堀 大蔵 薬師寺道明

Prenatal Ultrasound Diagnosis of Congenital Mesoblastic Nephroma

Tsugumichi TOKUDA, Masahide HOTTA, Masanori IKEDA, Kiwako TANABE, Shizue HONDA,

Satoshi MIYASHIMA, Norio SATO, Daizo HORI and Michiaki YAKUSHIJI

Department of Obstetrics and Gynecology, School of Medicine, University of Kurume, Fukuoka

Abstract Most prenatally diagnosed cases of Congenital Mesoblastic Nephroma (CMN) have been complicated with hydramnion or hydrops fetalis. We report a case of prenatal ultrasound diagnosis of CMN not complicated by hydramnion or hydrops fetalis. The tumor mass was $3.8 \times 4.2 \times 5.0$ cm in size in the left abdomen not crossing the median line, and the outline was clear on ultrasound. The tumor was smaller for birth weight than in other prenatally diagnosed cases of CMN. We speculate that hydramnion or hydrops fetalis is due to the obstruction of circulation caused by pressure of the tumor mass.

Key Words : Congenital Mesoblastic Nephroma · Prenatal diagnosis · Ultrasonography

緒 言

Congenital Mesoblastic Nephroma (以下CMNと略す)は1967年に Bolande et al. によって提起された腫瘍である¹⁾。CMN は小児腎腫瘍の約3%を占め、その多くは出生直後に無症状の腹部腫瘍として発見される。本腫瘍は Wilms 腫瘍との鑑別が重要であるが、臨床的に良性で、組織学的には上皮性悪性成分が欠如し、間葉系組織が優位であることから鑑別される¹⁾。

近年超音波機器の進歩とともに、本腫瘍を出生前に診断した報告例も散見されるようになったが、そのほとんどが羊水過多、もしくは胎児水腫を契機に発見されている^{2)~7)}。今回われわれは、羊水過多や胎児水腫を認めなかったCMN症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例は29歳の1経妊1経産婦で、既往歴、家族

歴に特記すべきことはなかった。今回の妊娠経過は、近医で妊婦健診を受け、妊娠39週1日に超音波検査で胎児腹腔内腫瘍を認めたため、当科紹介受診となった。

胎児超音波断層法では、胎児左側腹部に正中線を越えない境界明瞭な $5.6 \times 4.6 \times 6.0$ cmの低～中輝度の混在した充実性の腫瘍像を認めた(図1)。腫瘍内には石灰化の所見はなく、辺縁に圧排された正常の腎盂の形態を認めた。一方、右腎の形態は正常に保たれていた。羊水ポケットは50mm、AFIは16.1cmで羊水過多は認められなかった。また胎児水腫や胎児、胎盤への転移を疑わせる所見もなかった。腫瘍内部は血管豊富な部もあり、腫瘍内部3カ所平均のResistance index (RI値)は0.6であった。また、胎児の左心収縮率は0.29、時間尿産生率は0.67ml/分であった。また、母体に妊娠中毒症はなく、児のNSE値を反映するとされる母

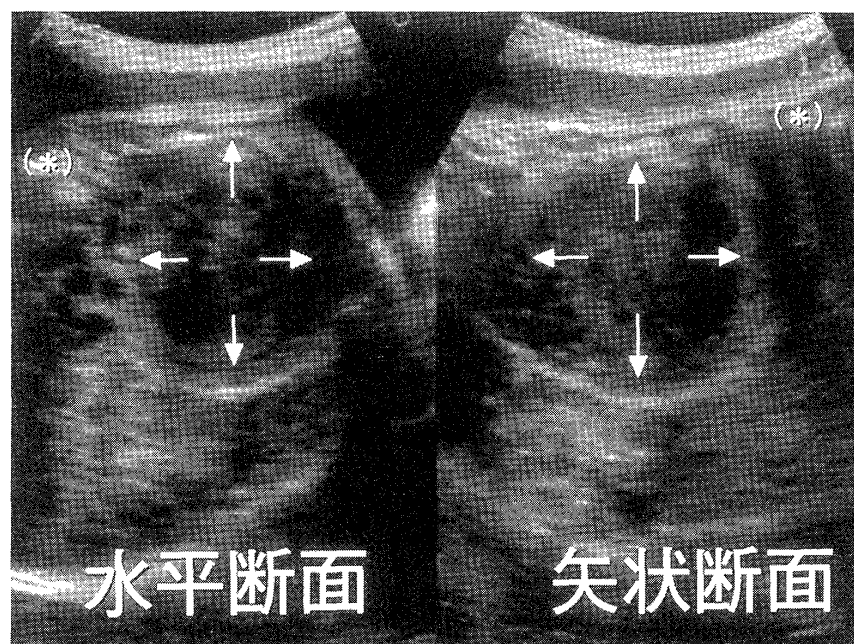


図1 出生前超音波断層法

5.6×4.6×6.0cm の境界明瞭な充実性の腫瘤 (→) 水平断面 (左) と矢状断面 (右), (*) は脊椎を示す。

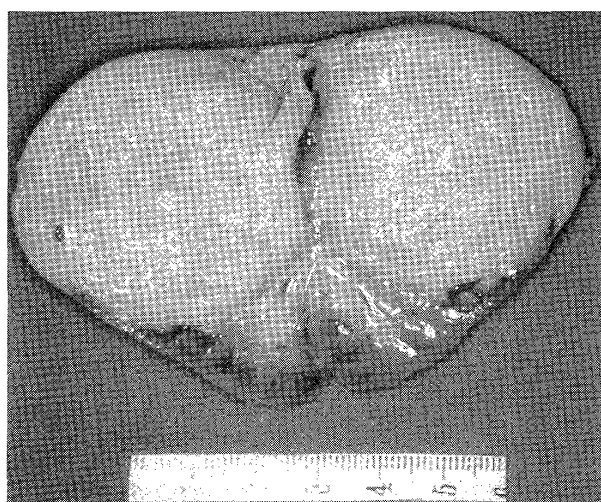


図2 摘出腫瘍の剖面

腫瘍は左腎上方4/5を占め、周囲との境界は明瞭。

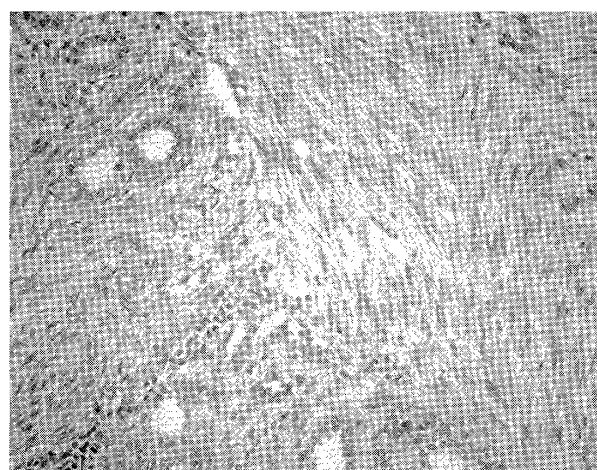


図3 摘出腫瘍病理組織像 (×200, HE 染色)

充実性に増殖した紡錘形の細胞が不規則に錯走。腫瘍細胞による腎実質の破壊像は認めない。細胞異型(-), 核分裂像(-), 脈管浸潤(-)。

体血 Neuron Specific Enolase (NSE 値) [RIA] は 8.2ng/ml (正常値10ng/ml 以下) と正常であった。妊娠40週6日に自然陣痛発来し、経膈分娩にて Apgar Score: 1分後9点, 5分後9点の3,488g 男児を出産した。児の理学的所見では、左上腹部に腹部正中線を越えない表面が滑らかな弾性硬の腫瘤を触知した。児血の腫瘍マーカーでは AFP: 53,106.9ng/ml (新生児正常値100,000ng/ml 以下),

CEA: 1.1ng/ml (正常値5ng/ml 以下), NSE [RIA]: 9.4ng/ml (正常値10ng/ml 以下) といずれも正常であった。尿検査でも潜血を認めず、尿中 vanillylmandelic acid (VMA 値) も正常であった。また、多くの CMN 症例と同様に、血圧の上昇 (120/80 mmHg 程度) を認めた。CT では、出生前超音波断層法所見と同様に左腎に約4.0cm 大の腫瘤像を認め、腫瘤は腎外に発育していたが、腹部正中線を

表1 CMN 胎児期発見例における出生体重と腫瘍径の関係

症例	発見機転	出生体重 (g)	腫瘍の大きさ (cm)
稲垣ら ¹⁾ (1987)	羊水過多	2,090	6.0 × 5.0 × 4.0
蕎摩林ら ³⁾ (1988)	羊水過多	3,166	8.0 × 7.0 × 4.0
内田ら ⁶⁾ (1989)	羊水過多	3,685	7.0 × 5.5 × 5.0
田原ら ⁷⁾ (1989)	羊水過多	2,200	4.5 × 5.5 × 6.0
Liu et al. ³⁾ (1996)	胎児水腫	3,000	5.8 × 5.7 × 6.3
本症例	胎児腹腔内腫瘍	3,488	3.8 × 4.2 × 5.0

越えてはいなかった。腫瘍内部に明らかな石灰化像や嚢胞成分、出血性変化を疑わせる所見はなく、腫瘍辺縁部に圧排された腎皮質様部分を認めた。この腫瘍に対し生後27日に左腎摘出術が施行された。

摘出腫瘍の表面は淡黄白色、滑らかで、ゴム様の弾性があり、大きさは3.8×4.2×5.0cmであった。剖面像では左腎の上方約4/5を腫瘍組織で占められ、周囲との境界は明瞭であり、外方への浸潤傾向もなかったが、被膜は認められなかった(図2)。組織学的所見では腫瘍細胞による腎実質の破壊像はなく、腫瘍内部は充実性に増殖した紡錐形の細胞が不規則に錯走していた。また、細胞異型、核分裂像、脈管浸潤は認めなかった(図3)。以上の臨床所見および組織学的所見より、Congenital Mesoblastic Nephroma (fibromatous type) の確定診断に至った。術後は腫瘍再発や合併症もなく順調に経過している。

考 察

腎、副腎部に一致する充実性腫瘍では、Neuroblastoma, Wilms 腫瘍, CMN などの腫瘍が考えられるが、今回の症例では、腫瘍に嚢胞性部分がないこと、腫瘍が胎児腹部正中線を越えていないこと、Neuroblastoma で上昇する⁸⁾とされるNSE値が正常であったこと、転移がなかったことからNeuroblastomaを除外した。また、過去の報告例のように羊水過多、胎児水腫^{2)~7)}は認めなかったが、正常腎形態が残存すること、胎児新生児期における腎腫瘍の頻度がCMNの方が圧倒的に多いことからCMNと推測した。一般に羊水過多を伴うCMNは予後良好で、胎児水腫を伴うと児の予後は

不良である^{2)~7)}。CMNにおける羊水過多の要因として、田原ら⁷⁾は、時間胎児尿産生率の増加を報告し、胎児水腫の原因として、Liu et al.³⁾は、腫瘍による肝圧排による門脈・下大静脈の還流障害と高拍出型心不全を推測している。このように高拍出型心不全による腎血流量の増加が代償的であれば羊水過多となり、非代償的になると胎児水腫になることが示唆された。本症例で羊水過多や胎児水腫が認められなかったが、これは腫瘍が肝の圧排や下大静脈還流障害による胎児循環不全を起こすだけの大きさがなかった(心駆出率、時間尿産生率正常)のためと推測される。過去の報告例^{3)~7)}の出生体重と腫瘍径の関係を検証してみると、羊水過多・胎児水腫症例に比べて本症例における腫瘍径は小さかった(表1)。以上のように、CMNの診断に羊水過多や胎児水腫は必ずしも有用な情報とはならないことが推測された。事実、CMNとの鑑別で最も問題となるWilms腫瘍でも羊水過多は認められている⁹⁾。近年超音波による良悪性腫瘍の鑑別として腫瘍内血流の有用性が示唆されている。CMNと悪性腫瘍であるWilms腫瘍の鑑別は最終的には組織診断によらざるを得ないが、本症例の腫瘍内部のRI値は0.6であり、悪性を疑わせるとされる値(0.4以下)よりも高かった¹⁰⁾。現時点では両者の鑑別は、CMNが胎児新生児期の腎腫瘍の大部分を占めるという点のみであり、Howell et al.¹¹⁾によると米国National Wilms' Tumor Study (NWTs)にて、1969~1984年に登録された3,340症例中、生後30日以内の症例は27例あり、CMNは18例、Wilms腫瘍は4例であった。

CMNには本症例で認められたfibromatous typeと、出血・壊死を伴い腫瘍細胞がより緻密に並んで核分裂像が多いcellular typeがある。cellular typeは、再発や転移が認められ、その悪性に近い組織像や臨床像からWilms腫瘍に準じて化学療法を追加すべきという見解もあり¹²⁾、胎児腎腫瘍の診断は出生後の児の管理に重要な情報となることが示唆された。

結 語

近年の超音波機器の進歩によって、超音波検査による情報量は増加し、種々の先天異常の出生前

診断が可能となる。胎児期の腎腫瘍の出生前診断例も増加していくことが予想されるが、現状では認識度の低さから、CMN の頻度が高いにもかかわらず、組織診断が判明するまで悪性腫瘍として取り扱わざるを得ない場合が多い。今後は、質的診断方法の向上が望まれる。

文 献

1. Bolande RP, Brough AJ, Izant RJ. Congenital Mesoblastic Nephroma of infancy, A report of 8 cases and the relationship to Wilms' tumor. *Pediatrics* 1967; 40: 272—278
2. Guilan BB. Prenatal ultrasonographic diagnosis of fetal renal tumors. *Radiology* 1984; 152: 69—70
3. Liu Y-C, Mai Y-L, Chang C-C, Chen K-W, Chow S-N. The presence of hydrops fetalis in a fetus with Congenital Mesoblastic Nephroma. *Prenatal Diagnosis* 1996; 16: 363—365
4. 稲垣真澄, 安藤幸典, 門野 勉, 大谷嘉明, 清水法男, 松井克明. 出生前超音波診断により発見された先天性腎腫瘍—Congenital Mesoblastic Nephroma の一例. *小児科臨床* 1987; 40: 245—249
5. 蕎摩林恭子, 伊藤泰雄, 荏澤融司. 出生前診断し得た先天性腎腫瘍の1例. *日小外会誌* 1988; 24: 1531
6. 内田正志, 板垣明味, 藤野俊夫, 山本 薫, 金田芳孝, 酒徳治三郎. 羊水過多生を契機に超音波検査で発見された Congenital Mesoblastic Nephroma の一例. *小児科* 1989; 30: 333—335
7. 田原正浩, 大道正英, 田坂慶一, 杉田長敏, 谷澤修, 鎌田新吉, 長谷川利道, 岡田 昭. Congenital Mesoblastic Nephroma による胎児多尿で羊水過多症を呈した 1 症例. *産婦人科の進歩* 1989; 41: 367—370
8. Dreyfus M, Neuhaert D, Baldauf J-J, Casanova R, Becmeur F, Ritter J. Prenatal Diagnosis of Cystic Neuroblastoma. *Fetal Diagn Ther* 1994; 9: 269—272
9. 上井義之, 土田嘉昭, 本名敏郎, 古田一徳, 古村真, 朝長哲弥. 胎児・新生児の腎腫瘍. *周産期医学* 1990; 20: 1357—1362
10. 前田一雄, Kurjak A. 婦人科疾患の最新超音波診断 東京: メジカルビュー社, 1994; 188—189
11. Howell CG, Otherseen HB, Kiviat NE, Norkoll P, Beckwith JB, D'Angio GJ. Therapy and outcome in 51 children with Mesoblastic Nephroma, A report of the National Wilms' Tumor Study. *J Pediatr Surg* 1982; 17: 826—830
12. 澤田 淳, 石割康平, 石田宏之, 近江園善一, 角能庸介, 松田義和, 森本昌史. 胎児・新生児の腎尿路疾患—腎腫瘍. *周産期医学* 1996; 26: 813—818

(No. 7989 平10・6・10受領, 平10・11・2採用)