

〔臨床報告〕

小児の膀胱に発生した原発性横紋筋肉腫の1例

東京女子医科大学外科教室 (主任: 織畑秀夫教授)

太田 オオタ	英樹・織畑 ヒデキ	秀夫・倉光 オリハタ	秀磨・島本 ヒデオ	悦次 クラミツ	悦次 シマモト	悦次 エツジ
斎藤 サイトウ	正光・新福 マサミツ	栄彦・杉村 シンブク	忠彦・徳川 エイヒコ	英雄 スギムラ	英雄 タダヒコ	英雄 ヒロシ
萩原 オギハラ	英夫・岩崎 ヒデオ	裕 イワサキ	裕 ヒロシ			

東京女子医科大病院中検病理部

平 ヒラ	山 ヤマ	章・瀬 アキラ	木 セ	和子 カズ	和子 コ
---------	---------	------------	--------	----------	---------

(受付 昭和50年4月26日)

はじめに

膀胱肉腫は比較的まれな疾患であり、大部分は膀胱内腔に発生するものである。われわれは最近小児の膀胱外壁に発育を示した原発性膀胱横紋筋肉腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 横○加○子 1.4歳 女児

主訴: 腹部腫瘍

家族歴: 特記することなし。

既往歴: 特記することなし。

現病歴: 生下時体重 3,050 g。吸引分娩を行なっている。生下時より腹部膨満を認めたが、3ヵ月健診で何も言われず放置していた。昭和46年9月14日、近医を受診し浣腸等の治療を受けたが便は正常で、腹部膨満は消失しなかつた。ただちに当大学小児科を受診し、腹部腫瘤の診断を受け、外科へ転科となつた。

入院時所見: 身長76.5cm, 体重9.15kg, 腹囲44cm, 一般状態良好, 皮膚色正常, 心音, 呼吸音ともに清, 表在リンパ節の腫脹なし, 肝, 脾は触知せず, 膝蓋腱反射正常。

腹部所見では、腫瘍は右腹部全体を占め、表面平滑, 境界は比較的鮮明である。硬度は右側で硬く, 移動性は上部にみられる。触診所見では実質性の腫瘍が疑われた(写真1)。

尿所見では、色調淡黄, 反応酸性, 比重1.020, 混濁なし, 蛋白, 糖, ビリルビン, アセトンいずれも陰性, 沈渣では白血球5~6視野に1個, 赤血球5~6視野に0~1個, 扁平上皮少数が認められた。生化学, 肝機能, 心電図所見で特に異常を認めない。

レントゲン所見では、頭部, 胸部ともに異常陰影を認めず, 腹部単純写真では左側圧排された大腸のガス像がみられる(写真2)。静脈性腎盂撮影

Hideki OHTA, Hideo ORIHATA, Hidemaro KURAMITSU, Etsuji SHIMAMOTO, Masamitsu SAITO, Eihiko SHINPUKU, Tadahiko SUGIMURA, Hideo TOKUGAWA, Hideo OGIHARA, Hiroshi IWASAKI, Department of Surgery (Director: Prof. Hideo ORIHATA), Tokyo Women's Medical College.

Akira HIRAYAMA, Kazuko SEGI, Department of Surgical Pathology, Tokyo Women's Medical College Hospital: A case of the primary rhabdomyosarcoma of urinary bladder in infant.

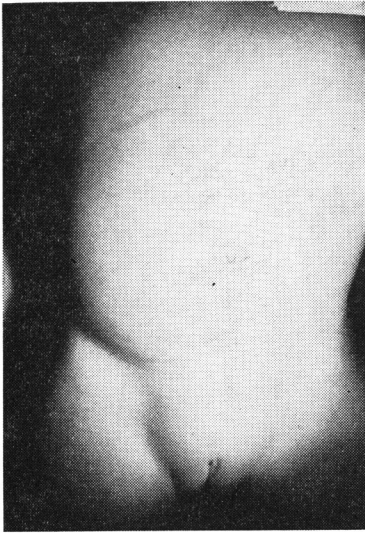


写真1 腫瘍は右腹部全体に及んでいる。

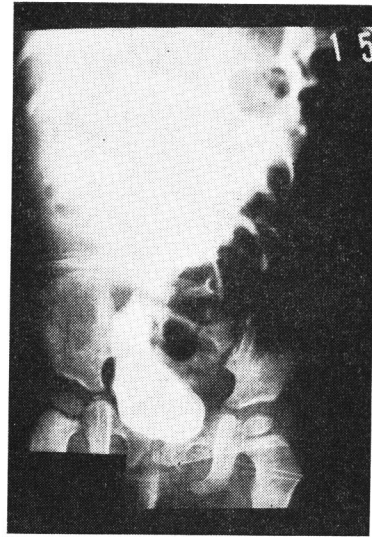


写真3 膀胱造影

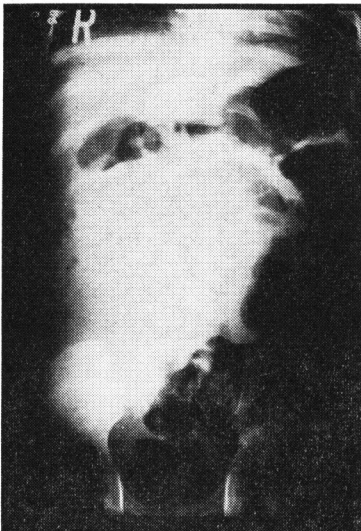


写真2 腹部単純撮影

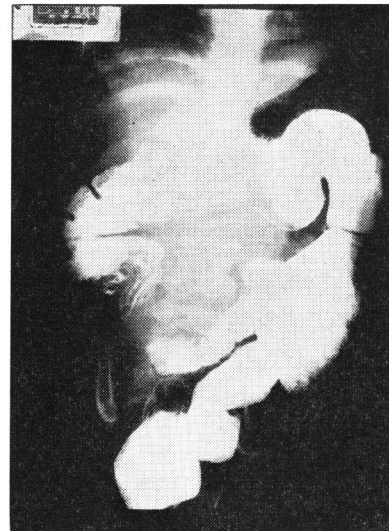


写真4 注腸造影正面像

では左右腎に偏位なく、大きさは正常であるが、右下部尿管の造影不良がみられる。膀胱造影では右上方に腫瘍により牽引され、凸に変形した膀胱がみられる(写真3)。胃腸造影では、胃は横位を示し、左上腹部に空腸の圧排像がみられる。注腸造影では、回腸末端は腫瘍により後方に圧排され、回腸は左方に移動している(写真4)。側面像では回腸が腫瘍陰影の後方にある(写真5)。

以上の成績から、腫瘍は骨盤内右側から発生したものと考えられ、また注腸造影からは腹腔内のものと想像され、右卵巢の実質性腫瘍の疑いもたれた。

手術所見：気管内全身麻酔下にて、右傍正中切開で開腹、腫瘍は小児頭大で、腹膜と軽度の癒着を認めた。(写真6)。腹水の貯留なく、また両側卵巢にも異常なく、腫瘍は膀胱外壁に発生したも

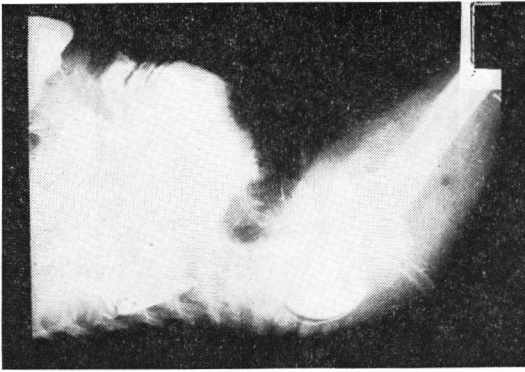


写真5 注腸造影側面像

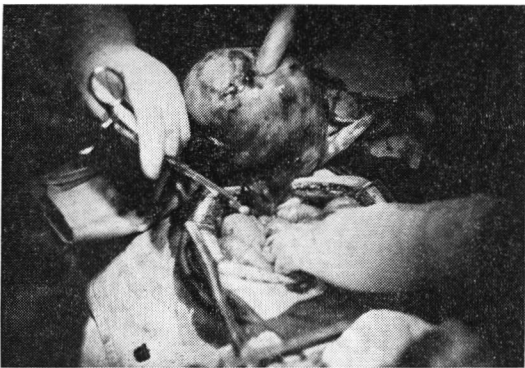


写真6 手術所見

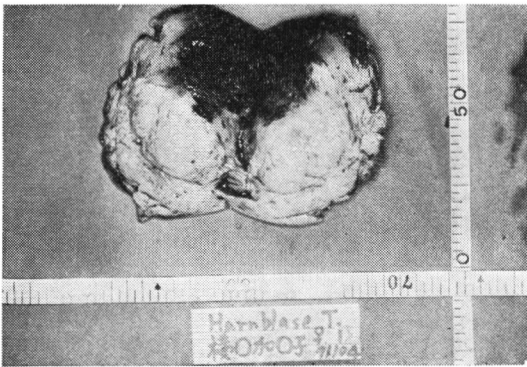


写真7 剥出腫瘍剖面

ので、膀胱の一部とともに剥出した。

腫瘍は表面のカプセルが厚く、剖面では中央部に囊腫および壊死様変化を認め、周囲に行くに従い、筋腫様変化を認めた(写真7)。膀胱粘膜は正常で、他臓器への転移およびリンパ節腫脹はみられなかった。

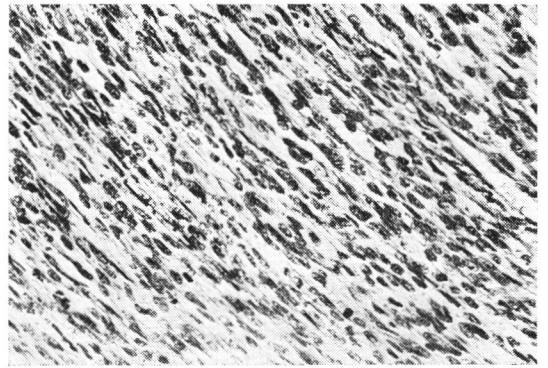


写真8 剥出標本組織像。ヘマトキシリン・エオジン染色

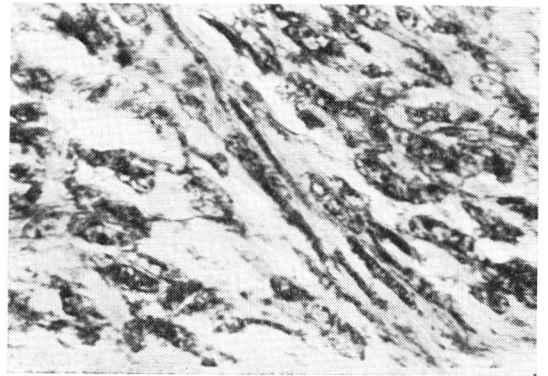


写真9 PTAH染色，強拡大．腫瘍細胞内に横紋が認められる。

病理組織学的検査：腫瘍はほぼ平行に走る紡錘形細胞から成り(写真8)，一部の細胞突起に明らかな横紋構造が証明された(写真9)。また腫瘍細胞の血管内侵入像が認められた。病理診断では胎児性横紋筋肉腫であつた。

術後経過：順調であり、化学療法および放射線療法を行う予定であつたが、家族の賛同が得られず術後15日目に退院した。

なお、その後の調査では、退院後約4カ月で腹水貯留、腹部膨満を訴え、順天堂大学病院へ入院、間もなく死亡している。

考 按

膀胱腫瘍中、肉腫の占める割合は極めて低く、外国^{1)~5)}では0.3~0.5%，本邦⁶⁾⁷⁾⁸⁾でも0.7~1.0%という報告がなされている。最近では、片山¹⁰⁾が1971年に106例目の報告を行なっている

が、その後のわれわれの調査では1974年5月までに13例報告されており、本症例は通算 120例目ということになる。

好発年齢は、Longley⁹⁾によれば10歳以下の小児および50歳以上の老人に多いとされ、本邦における市川⁹⁾の集計でも大体同様の傾向がうかがえる。

組織学的分類は、これまでの文献に従えば表1

表1 膀胱肉腫本邦報告例の組織分類

平滑筋肉腫	28例
横紋筋腫	23 "
ぶどう状	14 "
線維	9 "
紡錘形細胞	9 "
円形細胞	7 "
細網	6 "
粘液	4 "
多形細胞	4 "
骨形成	3 "
血管	2 "
線維平滑筋	2 "
軟骨	1 "
神経原性	1 "
筋	1 "
粘液線維	1 "
肉腫とのみ記載	4 "
不詳	1 "
計	120 "

の通りであり、平滑筋肉腫と横紋筋肉腫が大多数を占めている。McCrea & Past¹¹⁾による欧米287例の集計でも、平滑筋肉腫が36例で最も多く、次いで紡錘形細胞肉腫30例、円形細胞肉腫25例、横紋筋肉腫23例の順となつている。瀬野¹⁰⁾らは18歳未満39例の集計を行なつているが、横紋筋肉腫16例、ブドウ状肉腫6例、線維肉腫4例、平滑筋肉腫3例の順となつており、横紋筋肉腫が最も多い。

臨床症状としては、排尿困難、腹部腫瘤、血尿、頻尿等が多く、本症例の如く腹部腫瘤のみでその他の泌尿器科学的臨床症状がないという例は珍しい。その理由として、大部分の膀胱肉腫が膀胱内腔に発生するのに対し、本症例は膀胱外壁より発生し、腫瘤が腹腔内に存在しているために

泌尿器科学的症状を欠如したものと思われる。また、そのことが早期発見の遅延につながったということも十分考えられることである。

治療については、手術、放射線療法および化学療法の三者併用が第一の方法と思われるが、それも全身状態、病状に見合った適当な組合せが必要と思われる。放射線療法は無益で、かえつて腫瘍の発育を促進させると述べる学者¹⁴⁾もいる。手術については Canard & Rivarola¹⁷⁾は限局性なのは部分切除、広範なものは全切除が有効であると報告している。また田口¹⁸⁾は幼小児では手術侵襲が大きすぎるので、できるだけ侵襲の少ない尿路変更術にとどめ、抗腫瘍剤などの対症的処置にとどめるべきであると述べている。Grosfeld²⁰⁾らは根治手術と術後のコバルト60の局所照射および同時に Actinomycin D と Vincristine の長期反復投与により効果を上げたことを報告している。

予後は極めて悪く、Stowens¹⁵⁾らの報告では平均生存6ヵ月である Harry¹⁶⁾は膀胱、前立腺、精囊の全切除を行い、Actinomycin D の投与を行なつて7年以上の生存例を報告している。しかし、普通は術後2年以上の生存は稀なものとされている。

いずれにしても膀胱腫瘍は、たとえそれが良性的の場合でも、尿の通過障害を来たした場合、臨床的には悪性になるわけで、早期発見・早期治療が他の悪性腫瘍の場合と同様重要なポイントになるわけである。特に幼小児の場合は早期発見が困難で、悪性度も強く、症状が出現したときは手遅れという場合が大部分である。したがって好発年齢である10歳ぐらいまでは半年に1度位の定期検診を義務づけたらよいと思われる。

結 語

われわれは生後4歳4ヵ月の女児で、腹部腫瘤を主訴に来院し、開腹術の結果、膀胱外壁に発育を示し、組織学上胎児性横紋筋肉腫で腫瘍細胞の血管内侵入を認めた症例を経験したので報告した。

文 献

- 1) Caulk, J.R.: J Urol 16 211 (1926)

- 2) **Pack, G.T. and R.G. Fevre:** J Cancer Research **14** 167 (1930)
- 3) **Tompson, I.M. and A.J. Coppridge:** J Urol **82** 329 (1959)
- 4) **Dean, A.L. and Ash, Col, J.E.:** Urol **63** 618 (1950)
- 5) **Nagel, R.:** Zsch für Urology **6** 213 (1962)
- 6) 市川篤二: 日泌会誌 **49** 602 (1960)
- 7) 南 武: 日泌会誌 **51** 275 (1960)
- 8) 宮田宏洋: 臨泌 **24** 449 (1970)
- 9) **Longley, J.:** J Urol **73** 103 (1973)
- 10) 瀬野俊治: 臨泌 **27**(2) 145 (1973)
- 11) **McCrea, L.E. and E.A. Past:** Urol Surv **5** 307 (1955)
- 12) **Grier, E.A. and F.L. Phillips:** J Urol **69** 695 (1953)
- 13) **Giesy, J.D. and T.H. Lehman:** J Urol **93** 46 (1965)
- 14) **Hunt, R.W.:** New York J Med **43** 513 (1943)
- 15) **Stowens, D.:** Pediatric Pathology, 538 (1959)
- 16) **Harry C. Miller:** J Urology **101** Apr. (1969)
- 17) **Canard, R. and J.E. Rivarola:** J Urol **69** 272 (1953)
- 18) 田口裕功: 日泌会誌 **62** 3 (1971)
- 19) 片山 喬: 臨泌 **25** 6 (1971)
- 20) **Grosfeld, J.L. et al.:** J Pediat Surg **4** 637 (1969)
- 21) 野村恭博: 日泌会誌 **62** 274 (1971)
- 22) 木村 哲: 日泌会誌 **62** 409 (1971)
- 23) 吉田和彦: 日泌会誌 **62** 505 (1971)
- 24) 中平正美: 日泌会誌 **63** 565 (1972)
- 25) 渡辺悌三: 日泌会誌 **62** 570 (1971)
- 26) 加藤文彦: 日泌会誌 **63** 686 (1972)
- 27) 狩野健一: 日泌会誌 **63** 289 (1972)
- 28) 井上堯司: 日泌会誌 **63** 888 (1972)
- 29) 時住高洋: 西日本泌尿器科会誌 **34**(5) 554 (1972)
- 30) 酒井 晃: 日泌会誌 **64** 437 (1973)
- 31) 内藤克輔: 日泌会誌 **64** 438 (1973)
- 32) 田戸 治: 日泌会誌 **64** 612 (1973)
- 33) 宮腰達朗: 小児科診療 **37** 5 (1974)