初めて系統解剖にて発見された大殿筋直下の血管筋脂肪腫

大塚成人

昭和大学医学部第二解剖学教室

はじめに

血管筋脂肪腫(angiomyolipoma: AML)は腎過誤腫とも呼ばれるように、主として腎および腎周囲の後腹膜にみられる血管、平滑筋、脂肪組織の混在からなる良性腫瘍である。また、この腫瘍は30~60歳の女性に多く見られ、そのうち50%以上が結節性硬化症と合併するという報告がある。今回私は、生前、腫瘍の存在に気付かれず、結節性硬化症との合併のない血管筋脂肪腫を左大殿筋直下に認める症例を1例経験したので報告する.

対 象

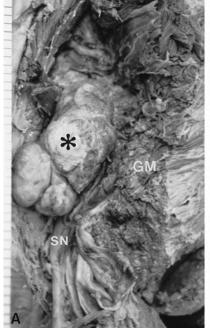
症例は男性で、38歳時より左殿部痛および左下腿後面にしびれ感が時々出現し、左坐骨神経痛と診断され対症療法にて治療されてきた以外は特に内臓疾患の既往はなかった。この男性は、64歳時に急性肺炎にて亡くなられて系統解剖のために献体されたため、エンバーミング法により大腿動脈と総頸動脈を使って防腐固定液が灌流され、その後約2年の経過ののち系統解剖となった。

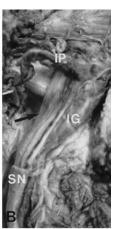
肉眼所見

本腫瘍は系統解剖で左大殿筋の筋腹を切開したとき、その直下に初めて確認された. 腫瘍は in situで、表面は平滑で被膜に包まれており、隣接する左坐骨神経を圧排し左下殿静脈はうっ血していたが、周囲の組織と癒着はしておらず、それぞれ1本ずつの動・静脈により身体と連結しているのみであった. この腫瘍の大きさは、8.5×4.0×3.5 cm で 63 g であった. 腫瘍の割面は、淡褐色、乳白色、乳黄色の部分が混在し、その中に大小不同の血管が認められた. また、その後の系統解剖により腫瘍に出入する血管は、左内側大腿回旋動・静脈の分枝であった. その他、全身を隈なく解剖したが、腫瘍を含め異常所見は見当たらなかった.

組織所見

肉眼における割面の色調が不均一であったのと同様に,組織においても腫瘍を構成している細胞が,腫瘍





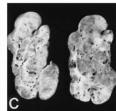


Fig. 1 A. Angiomyolipoma (*) under left gluteus maximus muscle (GM). Left gluteus maximus muscle is cut open, B. Congested left inferior gluteus veins (IG) run on left sciatic nerve (SN). Internal pudendal artery and vein (IP) are turned over. A groove in left sciatic nerve is shown (arrow), C. Sections of the tumor

内で不均一に分布していた.腫瘍内に見られる血管は、多数の大小不同の小血管および細血管で、血管壁の肥厚は、小血管レベルでは明らかでなかったが、細血管レベルではそれらが密に存在しているような部分で認められた.それら血管周囲には、主として紡錘形の myoid cells が錯綜していた.また、腫瘍内には成熟脂肪組織が存在し、脂肪細胞と脂肪細胞の間にはepithelioid cells が存在していた.その他、一部に細胞密度の粗な線維性組織が認められた.腫瘍以外では、左坐骨神経の腫瘍により圧排された部分に一致して、複数の神経線維束にonion bulb の形成が認めら

考 察

今回の腫瘍の検討に当って、エンバーミングまでの死後時間およびその後の組織切片作製までの時間は通常の病理解剖のそれと比べて長いが、その割に組織が保たれていたのは、防腐固定液を注入した大腿動脈から近い内側大腿回旋動脈の分枝が、腫瘍の栄養血管であったためと考えられた。HE 染色、Masson trichrome 染色より、腫瘍内には血管、平滑筋組織、脂肪組織が認められ、本腫瘍は血管筋脂肪腫と診断された。免疫組織化学的検討では、 α SMA(1A4)、HHF-35、HMB-45、Cam5.2、Caldesmon、Vimentin、Factor-VIII、S-100、CD68(KPI)、CD68(PG-M1)、MIB-1、p-53 の抗体を使って免疫染色を行った。その結果は従来いわれてきた血管筋脂肪腫の免疫染色結果とほぼ同じであった。

結 論

左大殿筋直下に存在する血管筋脂肪腫の1例を経験した.私が検索した範囲においては,血管筋脂肪腫の同部の出現は今まで報告されていない.本症例は左坐骨神経痛がありながら,その痛みの原因究明がされぬまま系統解剖となってしまったが,今後,同部位には坐骨神経を圧排するこのような腫瘍が出現することを含頭において,診療する必要性があることを警鐘したい.

文 献

- Ashfaq R, Weinberg AG, Albores-Saavedra J: Renal angiomyolipomas and HMB-45 reactivity. Cancer 71: 3091-3097, 1993
- Abdulla M, Bui HX, del Rosario AD et al: Renal angiomyolipoma; DNA content and immunohistochemical study of classic and multicentric variants. Arch Pathol Lab Med 118: 735–739, 1994
- 3) Insabato L, De Rosa G, Terracciano LM et al: Primary monotypic epithelioid angiomyolipoma of bone. Histopathol **40**: 286–290, 2002

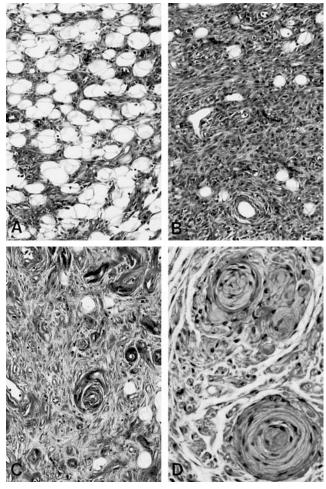


Fig. 2 A, B and C. Microscopically, the tumor is composed of blood vessels, smooth muscle cells and mature adipose tissues. A. An area of mature fat cells (H&E), B. An area of myoid cells (H&E), C. An area of small vessels with a thick wall (Masson trichrome), D. Onionbulbs of Schwann cells are shown around the degenerated axons in left sciatic nerve (H&E).

The first case of angiomyolipoma just beneath the gluteus maximus muscle

Naruhito OTSUKA

Department of Anatomy, Showa University School of Medicine

I report a case of angiomyolipoma just under the left gluteus maximus muscle in a 64-year-old man without evidence of tuberous sclerosis who died of acute pneumonia. Though he had shown limping, dysesthesia and hyperalgesia of his left leg for 27 years, the tumor was not noticed until dissection by systematic anatomy. The abnormal tissue was found when the left sciatic nerve was pushed aside and the left gluteus maximus muscle was cut open. The tumor measured $8.5 \times 4.0 \times 3.5$ cm, 63 g and was elastic soft without adhesion to the surrounding tissues. The surface was covered by capsule. On sectioning, the color of light brown, milky white and milky yellow were intermingled in the tumor with blood vessels of various sizes. Microscopically, the morphology of the tumor was similar to that described for classic angiomyolipoma. Moreover, the result of immunohistochemical examination supported the pathological diagnosis. In addition, partial axons of left sciatic nerve were degenerated and loss histologically, and onion-bulbs of Schwann cells were found around the degenerated axons. Angiomyolipoma is an uncommon benign tumor. Angiomyolipomas are most frequently found in the kidney. Extrarenal occurrence is rare. To date, no case of angiomyolipoma under the gluteus maximus muscle has been reported. **Key words:** angiomyolipoma, gluteus maximus muscle, onionbulb