

Title	胞巣状軟部肉腫の血管造影所見
Author(s)	森山, 高明; 中條, 政敬; 島田, 受理夫 他
Citation	日本医学放射線学会雑誌. 1992, 52(5), p. 594-599
Version Type	VoR
URL	https://hdl.handle.net/11094/15794
rights	
Note	

Osaka University Knowledge Archive : OUKA

<https://ir.library.osaka-u.ac.jp/>

Osaka University

胞巣状軟部肉腫の血管造影所見

- 1) 鹿児島大学医学部放射線科
- 2) 鹿児島大学医学部整形外科
- 3) 今給黎総合病院

森山 高明 中條 政敬 島田受理夫 宮園 信彰
内山 典明 井上 裕喜 小山 隆夫 宮路 紀昭¹⁾
伊藤 博史 森本 典夫²⁾ 大久保幸一³⁾

（平成3年7月24日受付）

（平成3年10月9日最終原稿受付）

Angiographic Features of Alveolar Soft-Part Sarcoma

Takaaki Moriyama¹⁾, Masayuki Nakajo¹⁾, Jurio Shimada¹⁾, Nobuaki Miyazono¹⁾,
Noriaki Uchiyama¹⁾, Hiroki Inoue¹⁾, Takao Oyama¹⁾, Noriaki Miyaji¹⁾,
Hiroschi Ito²⁾, Norio Morimoto²⁾ and Koichi Okubo³⁾

¹⁾Department of Radiology, Faculty of Medicine, Kagoshima University

²⁾Department of Orthopaedic Surgery, Faculty of Medicine, Kagoshima University

³⁾Imakiire General Hospital

Research Code No. : 611.9

Key Words : Alveolar soft-part sarcoma, Soft tissue tumor,
Angiography, TAE

The angiographic findings were analyzed in five patients with alveolar soft-part sarcoma.

The angiographic appearance of the tumors was the same in all five cases: hypervascularity of the tumor including encasement, dilatation, tortuosity and displacement of feeding arteries, remarkable tumor stain and early venous filling.

These angiographic findings are considered to be characteristic of alveolar soft-part sarcoma in the differential diagnosis of hypervascular soft tissue mass.

はじめに

胞巣状軟部肉腫は、主として四肢に発生する稀な悪性軟部腫瘍とされている。その組織由来は未だ明らかでない。病理学的にはその特徴的な組織像のため、本邦報告例は1989年の仲間らの報告¹⁾によると100例を越えるが、臨床的に本疾患の画像診断について述べた文献は少ない^{2)~4)}。一方四肢軟部腫瘍に対して施行される血管造影の役割は、診断面からは腫瘍の大きさ、性状、周囲組織との関係を明示し、良悪性の鑑別を行い、治療面からは生検時、出血を最小限にするための塞栓術、栄

養動脈からの制癌剤注入法などがあり、血管造影は診断及び治療における大切な modality の一つと考えられる。今回我々は血管造影を施行した本疾患の5例についてその所見を検討したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

I. 対象と方法

対象は1987年10月から1991年3月までに当院ならびに関連病院で血管造影を施行し、病理学的に胞巣状軟部肉腫の組織診断の得られた5例である。全例 Seldinger 法にて大腿動脈よりアプローチし、2例で DSA を施行した(アンジオテンシン

Table 1 The patients list of alveolar soft-part sarcoma

Case	Age	Sex	Site	Size
1	12	M	Lt. thigh	4 cm
2	40	M	Rt. thigh	5 cm
3	19	M	Rt. posterior neck	6 cm
4	24	F	Rt. hip+lung meta	5 cm
5	20	F	Rt. thigh+lung meta	9 cm

Lt.: left Rt.: right
Tumor sizeはCT, MRIにて計測.

II等の薬理血管造影は施行していない). Table 1に本疾患5例の年齢, 性, 部位をまとめた. 年齢は12歳から40歳で, 平均23歳であった. 性別は男3例, 女2例で, 部位別では大腿部3例, 臀部1例, 頸部1例であった.

II. 結 果

Table 2にその血管造影所見をまとめた. 全例で腫瘍への栄養動脈が見られ, 血管増生度は顕著

であった. また栄養動脈の拡張, 蛇行, 偏位も全例で認められた. encasement及び腫瘍濃染も認められ, 特に腫瘍の染まり方がDSAで観察された. 大きなdrainage veinsが実質相より描出されるearly venous fillingも認められた.

III. 症 例

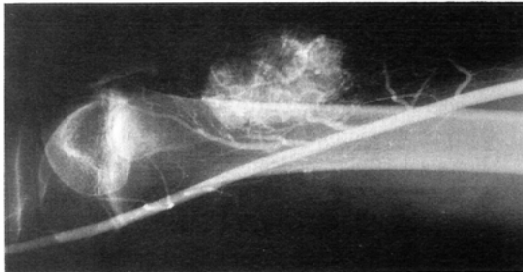
(症例1) 12歳, 男性. 左大腿遠位部に4cmほどの腫瘍を認めた. 左大腿動脈造影の動脈相では, 大腿動脈より腫瘍に対して拡張した数本の栄養血管が認められ, 屈曲蛇行が強く(Fig. 1A), 実質相では腫瘍濃染が顕著で, early venous fillingも認められた(Fig. 1B).

(症例2) 40歳, 男性. 右大腿近位部に5cmほどの腫瘍を認めた. 右大腿動脈造影の動脈相では, 栄養動脈の屈曲やencasementが認められた(Fig. 2A). 実質相で腫瘍濃染が顕著であった(Fig. 2B). その染まり方をDSAでよく観察できる(Fig. 2C). 前医での生検時の組織像とgelform

Table 2 Angiographic findings of alveolar soft-part sarcoma

Case	Feeding arteries					Early venous filling	Tumor stain
	Vascul.	Dilat.	Tort.	Displ.	Encasement		
1	++	+	+	+	+	++	++
2	++	+	+	+	+	+	++
3	++	+	+	+	+	+	++
4	++	+	+	+	+	++	++
5	++	+	+	+	+	++	++

Vascul.: vascularities Dilat.: dilatation
Tort.: tortuosity Displ.: displacement

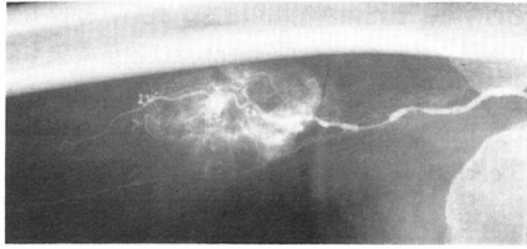


A

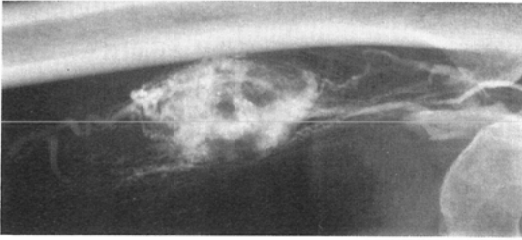


B

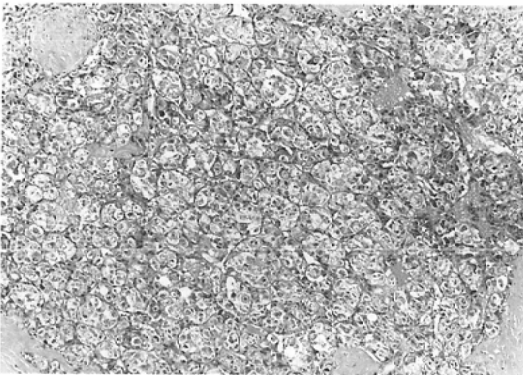
Fig. 1 Alveolar soft-part sarcoma of the left thigh of a 12-year-old boy (Case 1). A: Early phase of the arteriography: A hypervascular tumor with tortuous, dilated and encased tumor vessels fed by superficial femoral artery in seen in the left thigh. B: Late phase of the arteriography: Remarkable tumor stain and early venous filling are seen.



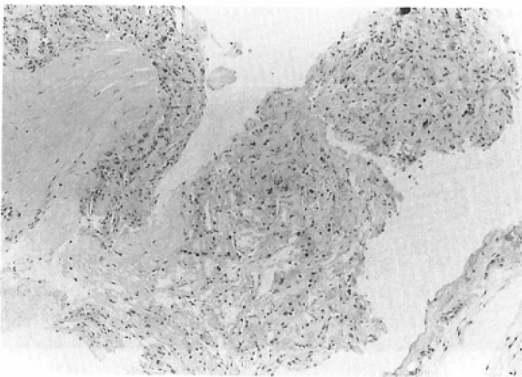
A



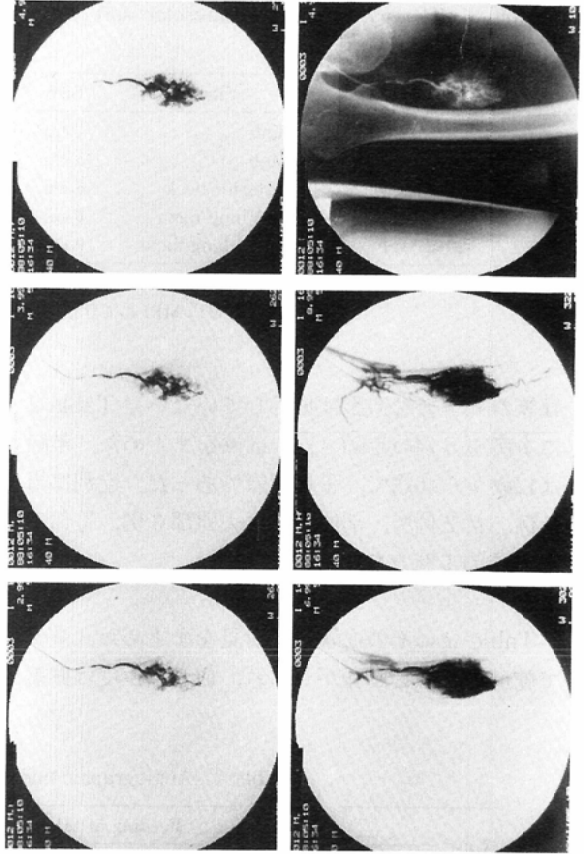
B



D



E



C

Fig. 2 Alveolar soft-part sarcoma of the right thigh of a 40-year-old man (Case 2).

A : Early phase of the arteriography : A hypervascular tumor with tortuous, dilated and encased tumor vessels fed by the profunda femoral artery is shown in the right thigh.

B : Late phase of the arteriography : Tumor stain and early venous filling are also noted.

C : DSA of the feeding artery demonstrates serial angiographic changes of the hypervascular tumor.

D : A photomicrograph of the material on biopsy shows a vascular, delicate stroma supporting an alveolar cellular pattern of large irregular, polygonal cells (H.E. Stain $\times 1,000$).

E : A photomicrograph of the removed tumor after arterial embolization shows tumor necrosis (H.E. Stain $\times 1,000$).

で塞栓術後手術で得られた摘出標本の組織像を比べてみると、塞栓前は腫瘍細胞が胞巣状に増生し、管腔構造を形成しているが (Fig. 2D)、塞栓術後では腫瘍細胞は広範囲に破壊され、壊死に陥っているのが認められる (Fig. 2E)。

(症例3) 19歳, 男性, 右後頸部に6cmほどの腫瘍を認めた。この腫瘍への栄養動脈は後頭動脈

や大耳動脈などから数本認められた。その後頭動脈のDSAでは症例2と同じ様相を呈していた (Fig. 3)。

(症例5) 20歳, 女性, 左大腿近位部に9cmほどの腫瘍を認めた。左大腿動脈造影では、栄養動脈の拡張や屈曲蛇行が強く、他の症例と類似の所見を呈した (Fig. 4)。

IV. 考 察

胞巣状軟部肉腫は、1952年 Christopherson ら⁵⁾が主に四肢の筋肉内に発生する軟部腫瘍に対して命名したものである。本邦では既に100例以上の報告があり¹⁾、決して稀な疾患ではない。しかし、多くは病理学的検討を中心とした症例報告である⁶⁾⁷⁾。大作ら²⁾が11例、加藤ら³⁾が7例で予後と治療成績を中心に臨床的に検討を加えているが、まだその画像診断について詳しく検討した文献は少ない⁴⁾。著者ら³⁾は以前本疾患の3例のMRIについて検討し、他の軟部腫瘍に比べてT1強調像が高信号を呈する事を述べたが、今回新たに2例を加え、5例の血管造影所見について検討を加えてみた。腫瘍への栄養動脈は全例拡張し、腫瘍の部位に一致して偏位し、屈曲、蛇行も著明で、腫瘍血管の増生は高度であった。腫瘍濃染も著明で、early venous filling が実質相より明瞭に描出された。この5例と川口ら⁹⁾の4例、他の報告例の血管造影所見³⁾¹⁰⁾を比べると非常に類似していた。

本疾患の血管造影所見は、悪性線維性組織球腫 (Malignant Fibrous Histiocytoma: MFH) などと異なり、variationに富まず、同じ様相を呈し、組織学的構築を反映すると思われる。

一般に診断における血管造影の役割は、今日少なくなってきたおり、血管造影所見のみで鑑別診断を行うには無理がある。しかし血管造影は、腫瘍の良悪性の鑑別、腫瘍の大きさや進展範囲、血管増生度の判定と、これに引続いて行われる塞栓術や栄養動脈内制癌剤注入法に関して、有用であると報告されている³⁾。特に本疾患では特徴ある血液造影所見を呈するので、血管造影は他の軟部腫瘍との鑑別診断法として重要と考えられる。小田ら¹¹⁾、中馬ら¹²⁾、上尾ら¹³⁾、山脇ら¹⁴⁾の報告を参考にして、本疾患との鑑別を要する疾患の血管造

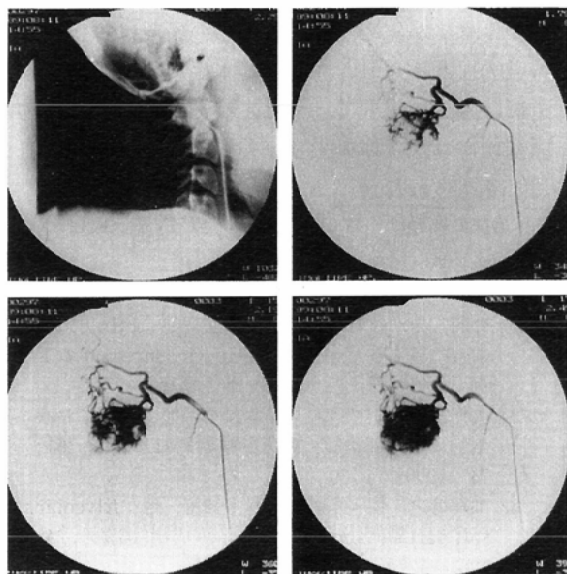


Fig. 3 Alveolar soft-part sarcoma of the right posterior neck of a 19-year-old man (Case 3). DSA of the right occipital artery demonstrates serial angiographic changes of the hypervascular tumor. Note close resemblance to Fig. 2C.



Fig. 4 Alveolar soft-part sarcoma of the right thigh of a 20-year-old girl (Case 5). Arteriogram shows a hypervascular tumor in the right thigh, supplied by the branches of profunda femoral artery. Displacement and tortuosity of feeding vessels are seen.

Table 3 Differential diagnosis of soft tissue tumor by angiographic findings

Disease	Vascularity	Encasement	Early venous filling	Tumor stain
Alveolar soft-part sarcoma	++	-	++	++
Hemangioma	++	-	±	++
Arterio venous malformation	++	-	++	++
MFH	±~++	+	-~++	±~++
Rabdomyosarcoma	+~++	+	-	+~++

影所見を Table 3 にまとめてみた。血管造影上の鑑別疾患は、良性疾患では血管腫、動静脈奇形¹⁵⁾¹⁶⁾だが、これらの2疾患には腫瘍血管の偏位や encasement が認められず、鑑別可能と考えられる。一方、悪性疾患では、多彩な組織像を呈する MFH や横紋筋肉腫とは血管増生度、early venous filling、腫瘍濃染などで鑑別できると思われる^{11)~14)}。

ところで、本疾患は hypervascular tumor であるため、手術や生検に先立ち、出血を最小限に抑える目的で塞栓術の良い適応となる。症例2は前医で生検を施行され、生検後出血がなかなか止まらなかったというエピソードがあり、塞栓術前後の組織像 (Fig. 2D, 2E) を比べてみると塞栓術後の腫瘍細胞の変性壊死は明らかであり、塞栓術の有用性が組織学的に明らかにされた。このような骨軟部悪性腫瘍に対する interventional radiology の有用性に関しては、永露ら¹⁷⁾の骨肉腫に対する CDDP の動注療法、また松井ら¹⁸⁾の本疾患に対する CDDP の動注療法の報告があるが、ともに組織学的に腫瘍細胞の変性を確かめている。また本疾患の臨床的特徴の一つに、原発巣の腫瘍の増殖速度は遅いものの、初診時に多発性肺転移を認める事が挙げられる¹⁹⁾。症例4や5では気管支動脈からの制癌剤注入で、転移巣の増悪は認められなかった。転移形式は腫瘍が血管に富むため、血行性が多いとされ¹³⁾¹⁸⁾、動注療法や化学療法の併用は予後の改善に有用であると考えられる。

まとめ

胞巣状軟部肉腫5例の造影所見を検討した。全例 hypervascular tumor で、栄養血管の拡張、屈曲蛇行、偏位、encasement、early venous filling

や腫瘍濃染が認められ、これらの所見は本疾患に特徴的と考えられた。従って本疾患における血管造影は診断に重要で、また生検や手術に先立つ動脈塞栓術は、止血効果及び腫瘍縮小効果の点で有用と考えられた。

本論文の要旨は、第11回九州血管造影 IVR 研究会(平成2年12月15日、福岡)にて発表した。

文 献

- 1) 仲間 司, 牧野俊一, 岩谷真宏, 他: 14歳男児の前腕に発生した alveolar soft-part sarcoma の1例, 小児外科, 21: 1277-1281, 1989
- 2) 大作浩一, 川口智義, 松本誠一, 他: 当科における胞巣状軟部肉腫の臨床的検討, 日整会誌, 64: 747, 1990
- 3) 加藤博之, 佐々木鉄人, 八木知徳, 他: Alveolar soft part sarcoma の予後と治療成績, 臨整外, 22: 1261-1270, 1987
- 4) James GL, Francis NO, Harry LE, et al: The radiologic manifestations of alveolar soft-part sarcoma. AJR 153: 335-339, 1989
- 5) Christopherson WM, Foote FW Jr, Stewart EW: Alveolar soft-part sarcoma. Cancer 5: 100-111, 1952
- 6) Lieberman PH, Foote FW, Stewart FW, et al: Alveolar soft-part sarcoma. JAMA 198: 1047-1051, 1966
- 7) Evans HL: Alveolar soft-part sarcoma. Cancer 55: 912-917, 1985
- 8) 森山高明, 宮路紀昭, 宮園信彰, 他: Alveolar soft part sarcoma 3例の MRI, 臨放, 35: 1451-1454, 1990
- 9) 川口智義, 網野勝久, 磯辺 靖, 他: 軟部腫瘍の画像診断, その12, Fuji Medical Forum 140: 56-67, 1983
- 10) Radin DR, Ralls PW, Boswell WD, et al: Alveolar soft-part sarcoma: CT findings. J Comput Assist Tomography 8: 344-345, 1984
- 11) 小田淳郎, 椿本光男, 真鍋隆夫, 他: 四肢軟部腫瘍の血管造影像, 放射線科, 3: 301-311, 1984

- 12) 中馬広一, 篠原典夫, 増田祥男: 軟部腫瘍の診断, 臨整外, 18: 1037-1045, 1983
 - 13) 上尾豊二, 広谷速人, 伊藤鉄夫, 他: 軟部腫瘍およびその他の軟部疾患の血管造影について, 臨整外, 11: 816-831, 1976
 - 14) 山脇慎也, 姥山勇二, 光崎明生, 他: 軟部腫瘍の血管造影に関して, 臨整外, 12: 1083-1093, 1977
 - 15) Yeung HY, CMLOMB, et al: Misdiagnosed localized arteriovenous malformation. *J Vasc Surg* 6: 419-421, 1987
 - 16) Howard BA, Rubenstein JD, Lewis AJ: Case report 371. *Skel Radiol* 15: 468-472, 1986
 - 17) 永露 巖, 小林尚志, 内山典明, 他: 骨肉腫に対するシスプラチン動注療法, 癌と化学療法, 17: 47-52, 1990
 - 18) 松井寿夫, 牧山尚也, 金森昌彦, 他: 術前化学療法が有効であった胞巣状軟部肉腫の1例, 癌と化学療法, 18: 481-484, 1991
 - 19) Hurt R, Bates M, Harrison W: Alveolar soft-part sarcoma. *Thorax* 37: 877-886, 1982
-