症例報告

横行結腸間膜原発孤立性線維性腫瘍を腹腔鏡下に切除した1例

星ヶ丘厚生年金病院外科, 同 臨床検査科*

久下 博之 檜塚 久記 横山 貴司 鎌田喜代志
新見 行人 川崎敬次郎 辰巳 満俊 丸山 博司*

症例は72歳の男性で, 近医で腹腔内腫瘍を指摘され当院に紹介入院となった。腹部造影CTでは横行結腸近傍に6cmの造影効果を伴う腫瘍を認め, MRIではT1強調画像で低信号を示した。壁外発育型横行結腸原発 gastrointestinal stromal tumor (以下, GIST) と術前診断して手術を行った。術中所見にて横行結腸間膜から発生する腫瘍であることが判明した。結腸など周囲臓器への浸潤は認めなかった。中結腸動脈から分岐する栄養血管を含む基部を自動縫合器で一括処理し, 腹腔鏡下に腫瘍を切除した。切除標本は径6.1cm, 白色充実性腫瘍であった。病理組織学的検査所見ではCD34 (+), c-kit (-), bcl-2 (3+), labeling index (以下, L.I.) 6.8%を示し, 横行結腸間膜原発孤立性線維性腫瘍と診断した。結腸間膜由来の solitary fibrous tumor (以下, SFT) はまれであり, 腹腔鏡下に切除した症例は検索したかぎり認めなかった。文献的考察を加えて報告する。

はじめに

孤立性線維性腫瘍 (solitary fibrous tumor; 以下, SFT) は比較的まれな間葉系腫瘍で最初に胸膜病変として報告された¹⁾。近年では眼窩²⁾, 甲状腺³⁾, 腎⁴⁾, 頸髄⁵⁾など胸腔外に発生した症例が報告されている。病理組織学的には間質由来の腫瘍で紡錘形細胞が血管周皮腫様と表現される独特の血管パターン (patternless pattern) を示して増殖し, 免疫組織学的にはCD34陽性であるとされる⁶⁾。横行結腸間膜から発生したSFTを腹腔鏡下に切除した1例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 72歳, 男性

主訴: 特になし。

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: 69歳時に脳内出血, 71歳時に副甲状腺機能亢進症。

現病歴: 2007年10月に他院で副甲状腺機能亢

進症にて治療を受けたが, その際のスクリーニングCTにて腹腔内に6cmの腫瘍を指摘される。全身状態が安定した2008年6月に手術目的にて当院へ紹介となる。

入院時現症: 身長163cm, 体重51kg, 血圧140/85mmHg, 脈拍65回/分, 整。腹部は平坦かつ軟で, 触診では腫瘍を触知しない。

入院時検査所見: Cre 1.21mg/dl と高値以外は異常値を認めなかった。Ca値正常であった。

腹部単純X線検査: イレウス所見認めず。

腹部造影CT: 横行結腸近傍に6cmの造影効果を伴う腫瘍を認めた (Fig. 1)。3D-CTによる血管構築を行うと, 中結腸動脈から太い栄養血管を有することが明らかとなった (Fig. 2)。

腹部単純MRI: CTと同部位にT1強調画像で低信号, T2強調画像で等信号を示す腫瘍を認めた (Fig. 3)。

前医での大腸内視鏡検査では異常なしと報告あり, 当院で注腸検査を試みるも本人が強く拒否したため断念した。壁外発育型横行結腸原発 gastrointestinal stromal tumor (以下, GIST) 疑いと術前診断, 2008年7月上旬に腹腔鏡手術を行った。

<2010年3月24日受理>別刷請求先: 久下 博之
〒635-0022 奈良県大和高田市日之出町12-3 健生
会土庫病院大腸肛門病センター

Fig. 1 Abdominal computed tomography revealed a enhanced 6cm solid mass adjacent to the transverse colon (arrow).

Fig. 2 3D-angiography of the superior mesenteric artery revealed that an artery branching from middle colic artery fed a tumor (arrow).

手術所見：腹腔鏡補助下横行結腸部分切除術を予定してアプローチした。体位は碎石位、臍下に12mm カメラポートをおいた。術者は脚間に立ち、鎖骨中線上の臍レベル左右上腹部に、術者左手用5mm ポート、右手用12mm ポートを留置した。剣状突起下左側に助手用5mm ポートを留置し合計4 ポートで手術を行った。腫瘍は横行結腸や小腸とは連続性を認めず、横行結腸間膜前葉腹側に突出するように存在していた。周囲を剥離すると血管茎のみを遊離できたため腹腔鏡下に切除可能と

Fig. 3 T1 weighted magnetic resonance image showed a homogeneous low intensity mass 6cm in diameter (arrow).

Fig. 4 Laroscopic findings showed that the tumor was originated from mesentery of the transverse colon (a), and resected by Endo-GIA universal 45-2.5 (Covidien, USA) (b).

Fig. 5 Macroscopic view of the resected specimen showed whitish and solid tumor which was 61mm in size.

判断, 血管茎を自動縫合器(EndoGIA™ universal 30-2.5, Covidien 社製)で一括切離して腫瘍を摘出した(**Fig. 4a, b**)。術後経過は良好であり, 術後6日で軽快退院した。術後1年2か月経過するが再発は認めていない。

切除標本: 最大径6.1cmの白色充実性腫瘍で内部に出血壊死は認めず(**Fig. 5**)。肉眼的に切除断端陰性であった。

病理組織学的検査所見: 紡錘形細胞が花むしろ模様または索状, 渦巻状に錯綜し, いわゆる“patternless pattern”を形成して増生していた。核分裂像を少数認めた(L.I.; 25/362HPF=6.8%)。平滑筋肉腫よりも, 低悪性度のSFTまたはGISTを疑った(**Fig. 6a, b**)。免疫組織学的検査では, c-kit: 陰性, CD34: 陽性(**Fig. 6c**)。α-SMA: 陰性, MIB-1: 軽度陽性, vimentin: 陽性, desmin: 陰性, S100P: 陰性, bcl-2: 3+, CD99: 弱陽性であり, 病理学的にSFTと診断した。病理組織学的切除断端は陰性であった。

以上手術所見と病理組織学的検査所見から横行結腸間膜原発SFTと最終診断した。

考 察

孤立性線維性腫瘍SFTは成人に発生するまれな線維性腫瘍である。1931年にKlempererら¹⁾によって胸膜病変として報告されて以来, 多くは胸膜に関連した胸腔内の病変として報告されてい

Fig. 6 Patternless arrangement of spindle cells were in a collagenous background (a: HE stains, × 100), and mitotic cells were found in 25/362 HPF (b: HE stains, × 400) (arrow). Tumor cells were strongly reactive CD34 immunohistochemical staining (c: × 200).

る。近年では軟部組織をはじめ, 眼窩²⁾や甲状腺³⁾, 腎⁴⁾, 頸髄⁵⁾, 鼻腔内⁷⁾, 肝臓⁸⁾など胸膜と直接関連性のない臓器における発生例の報告を認める。WHO

Table 1 Reported cases of solitary fibrous tumor originated from the mesentery in Japan

Author	Year	Sex/Age	Location	Size (cm)	Mitosis	Immunohistochemical findings	Operation
1 Kume ¹⁵⁾	2002	47/F	superior mesentery	4 × 3 × 2.5cm	rarely seen	CD34(+), cytokeratin (-) desmin (-), HIF-35 (-)	open
2 Itagaki ¹⁶⁾	2004	61/M	superior mesentery	12 × 10 × 8cm	unknown	CD34 (+), vimentin (+) S-100 (-), desmin (-) SMA (-), c-kit (-)	open
3 Takagi ¹⁷⁾	2004	70/F	mesentery of the transverse colon	6 × 5 × 4cm	unknown	CD34 (+), c-kit (-) desmin (-), EMA (-) S-100 (-), SMA (-)	open
4 Nagai ¹⁸⁾	2004	57/M	hepatoduodenal mesentery	6 × 7.5 × 5cm	1/10 HPF	CD34 (+), vimentin (+)	open
5 Tsutani ¹⁹⁾	2006	53/F	mesentery of the ileum	14 × 11 × 8cm	7/50 HPF	CD34 (+), bcl-2 (+) keratin AE1/3 (-), SMA (-), EMA (-)	open
6 Hiromatsu ²⁰⁾	2006	47/M	mesentery of the colon	39.5 × 25 × 17cm	2 ~ 3/10 HPF	CD34 (+), Ki67 < 5% MIC-2 (+), bcl-2 (+)	open
7 Our case		72/M	mesentery of the transverse colon	6.1 × 4.2cm	25/368 HPF	CD34 (+), vimentin (+) CD99 (+), bcl-2 (3+) S-100 (-), desmin (-)	laparoscopic

腫瘍分類—病理と遺伝学, 骨軟骨腫瘍—⁹⁾では軟部組織発生を含む胸膜外の SFT が, 中悪性度の fibroblastic/myofibroblastic tumor の 1 つ に 分 類 され, 「身体のいたる所に発生する, おそらく fibroblastic な間葉系腫瘍であり, 血管周皮腫様 (hemangiopericytoma-like) と表現される独特の血管パターンを示す病変」と記載されている⁶⁾. 現在では全身にわたって広く存在する線維芽細胞関連抗原 (CD34) 陽性の線維芽細胞様間葉細胞ないし樹状間質細胞が SFT の細胞起源として想定されている¹⁰⁾.

SFT の臨床病理学的特徴については, 全身にわたって発生する可能性があり, 多くは緩徐発育性で無痛性腫瘍を形成するとされる¹¹⁾. 肉眼的には周囲との境界明瞭な硬い均一な白色充実性ないし分葉状の結節病変で, 被膜形成していることが多く⁶⁾, 時に有茎性腫瘍を呈する¹¹⁾.

SFT の組織学的特徴としては, 間質の膠原線維化とともに紡錘形の線維芽細胞が花むしろ模様もしくは索状, 渦巻状に増殖するとされる. これが SFT で高頻度にみられる “patternless pattern” と表現される所見であり, これは硝子化した膠原線維束の間に腫瘍細胞が特定の配列を示すことなく不規則かつ不均一に, 場所によっては数珠状に連

なるように分布する像を表現しているものとされる⁶⁾¹¹⁾. 紡錘形細胞は通常異型性の乏しい短紡錘形ないしは楕円形で, 微細なクロマチンと核小体が目立たない淡明な核と境界不明瞭で弱好酸性の少量の胞体をもつ. 一般に核分裂像は少数 (0~3/10 HPF) とされる. 免疫組織学的検査における特徴として, 間葉系細胞由来を示す vimentin, CD34 および bcl-2 が高率 (90% 以上) に陽性となり, CD99 が約 70% で陽性となる¹²⁾. 上皮細胞由来を示す cytokeratin, 神経や筋肉への分化を示す α -SMA, desmin, S-100 蛋白はほとんどの症例で陰性であるとされる⁶⁾.

SFT の予後は基本的には良好だが, まれに悪性の転帰をたどる例も存在するとされ, 胸腔外発生 SFT における悪性の割合は 10.8% との報告がある¹³⁾. 悪性度に関して, 病理組織学的に悪性所見, つまり高い細胞密度, 核異型の存在, 4/10 HPF 以上の核分裂像, 出血壊死巣の存在, 浸潤性発育, 形態学的には 10cm を超す腫瘍径が悪性の特徴とされている¹²⁾¹⁴⁾.

治療は外科的切除が第 1 選択であり, 切除断端を肉眼的, 病理組織学的に陰性とするのが重要であるとされる¹²⁾. 医学中央雑誌にて「孤立性線維性腫瘍」, 「腸間膜」をキーワードとし, 1983 年から

2009年まで検索(会議録を除く)したところ腸間膜原発SFTの本邦報告例は9例であった。そのうち腸間膜原発と論文内で確認できたのは6例(**Table 1**)^{15)~20)}で、腹腔鏡下切除を行い治療した報告例は認めなかった。

本症例は結腸間膜から発生したSFTであり腹腔鏡下手術にて肉眼的、病理組織学的にも切除断端陰性を得ることができ、低侵襲治療を両立することが可能であった。腹腔鏡下手術は従来の開腹手術と比較して低侵襲で整容性に優れているとされ、近年急速に普及している²¹⁾。本例のように腫瘍径が巨大でない、周囲組織との癒着剥離が困難でない、かつ根治性を損なうことがないと判断できれば、症例によって腹腔鏡下手術は低侵襲で非常に有用な手術法であると思われる。

なお、本稿の要旨は第64回日本消化器外科学会総会(2009年7月、大阪)において発表した。

文 献

- 1) Klemperer P, Rabin CB : Primary neoplasm of the pleura : a report of five cases. *Arch Pathol* **11** : 385—412, 1931
- 2) Miguel CN, Concha LG : Solitary fibrous tumor of the orbit : Morphological, cytogenetic and molecular features. *Neuropathology* **26** : 557—563, 2006
- 3) 斎藤智和, 河野通一, 清山和昭ほか : 甲状腺原発の孤立性線維性腫瘍の1例. *臨外* **63** : 1639—1643, 2008
- 4) 平林 淳, 小倉友二, 脇田利明ほか : 腎 Solitary fibrous tumor の1例. *泌紀* **54** : 357—359, 2008
- 5) 宝亀 登, 市村正一, 小川 潤ほか : 頸髄に発生した Solitary fibrous tumor の1例. *日脊髄障害医学会誌* **19** : 46—47, 2006
- 6) 久岡正典, 橋本 洋 : 孤立性線維性腫瘍とその類縁腫瘍. *病理と臨* **22** : 132—139, 2004
- 7) 平川直也, 白土秀樹, 中島寅彦ほか : 鼻腔内に生じた孤立性線維性腫瘍の1例. *耳鼻と臨* **55** : 74—78, 2009
- 8) Chan G, Horton PJ, Thyssen S et al : Malignant transformation of a solitary fibrous tumor of the liver and intractable hypoglycemia. *J Hepato Biliarypancreat Surg* **14** : 595—599, 2007
- 9) Fletcher CDM, Unni K, Mertens F et al : World Health Organization Classification of Tumours. Pathology & Genetics, Tumours of Soft Tissue and Bone. IARC Press, Lyon, 2002
- 10) Chan JKC : Solitary fibrous tumour-everywhere, and a diagnosis in vogue. *Histopathology* **31** : 568—576, 1997
- 11) 長谷川匡 : 孤立性線維性腫瘍および類似病変. *病理と臨* **18** : 117—122, 2000
- 12) England DM, Hochholzer L, McCarthy MJ et al : Localized benign and malignant fibrous tumor of the pleura. A clinicopathologic review of 223 cases. *Am J Surg Pathol* **13** : 640—658, 1989
- 13) Vallat-Decouvelaere AV, Dry SM, Fletcher CDM et al : Atypical and malignant solitary fibrous tumors in extrathoracic locations : evidence of their comparability to intra-thoracic tumors. *Am J Surg Pathol* **22** : 1501—1511, 1998
- 14) Gold JS, Antonescu CR, Hajdu C et al : Clinicopathologic correlates of solitary fibrous tumors. *Cancer* **94** : 1057—1068, 2002
- 15) Kume M, Komori K, Inoguchi H et al : Solitary Fibrous Tumor in the Retroperitoneal Space : Report of a Case. *Surg Today* **12** : 1099—1101, 2002
- 16) 板垣友子, 倉吉和夫, 河野菊弘ほか : 上腸間膜に発生した solitary fibrous tumor の1例. *松江市立医誌* **8** : 85—90, 2004
- 17) 高木真人, 青木利明, 深沢雄一ほか : 腸間膜孤立性線維性腫瘍に後腹膜脂肪肉腫が合併した1例. *日臨外会誌* **65** : 822—827, 2004
- 18) 永井盛太, 村林紘二, 赤坂義和ほか : 肝十二指腸間膜に発生した solitary fibrous tumor の1例. *日臨外会誌* **65** : 1381—1385, 2004
- 19) 津谷康大, 久保義郎, 栗田 啓ほか : 初回手術より9年後に再発した腸間膜由来 solitary fibrous tumor の1例. *手術* **60** : 671—675, 2006
- 20) 広松 孝, 秋田昌利, 長谷川洋ほか : 後腹膜原発巨大 solitary fibrous tumor の1例. *日消外会誌* **39** : 1604—1610, 2006
- 21) 日本内視鏡外科学会編 : 内視鏡外科診療ガイドライン. 第1版. 金原出版, 東京, 2008, p36—42

A Case of Solitary Fibrous Tumor of the Mesentery of the Transverse Colon resected by Laparoscopic Surgery

Hiroyuki Kuge, Hisanori Kashizuka, Takashi Yokoyama, Kiyoshi Kamada,
Yukihito Niimi, Keijirou Kawasaki, Mitsutoshi Tatsumi and Hiroshi Maruyama*

Department of Surgery and Department of Pathology*, Hoshigaoka Koseinenkin Hospital

We report treating a solitary fibrous tumor originated in the transverse colon mesentery by laparoscopically. A 72-year-old man admitted for an abdominal mass was found in enhanced computed tomography (CT) to have a 6cm solid mass adjacent to the transverse colon. An artery branching from the middle colic artery fed a tumor. T1-weighted magnetic resonance imaging (MRI) showed a homogeneous low-intensity mass. Laparoscopic surgery conducted for a suspected mesenchymal tumor arising from the transverse colon found that the tumor had originated in the transverse colon mesentery. We resected the tumor laparoscopically. Histologically, the tumor consisted of spindle cells presenting a "patternless pattern." The labeling index was 6.8%. Immunohistochemical staining was positive for CD34 and bcl-2 and negative for c-kit, α -SMA, vimentin, and desmin. The tumor was definitively diagnosed as a benign solitary fibrous tumor of the transverse colon mesentery.

Key words : solitary fibrous tumor (SFT), mesentery, laparoscopic surgery

[Jpn J Gastroenterol Surg 43 : 1076—1081, 2010]

Reprint requests : Hiroyuki Kuge Department of Surgery, Kenseikai Dongo Hospital
12-3 Hinode-cho, Yamatotakada, 635-0022 JAPAN

Accepted : March 24, 2010