症例報告

腹腔鏡補助下に切除した大腸神経線維腫の1例

独立行政法人病院機構嬉野医療センター外科, 同 病理*

野中 隆 柴田 良仁 黨 和夫
本庄 誠司 内藤 慎二* 岡 忠之

患者は71歳の男性で、検診目的の大腸内視鏡検査にて、下行結腸に粘膜下腫瘍を指摘され、精査加療目的で当院へ紹介となった。下行結腸の病変は超音波内視鏡検査や腹部造影CTでは指摘できなかったが、大腸内視鏡検査にて管腔の約1/2周性の陥凹を伴う粘膜下腫瘍を認め、下行結腸粘膜下腫瘍の診断のもと、腹腔鏡補助下結腸切除を施行した。下行結腸の病変は病理組織学的には、被膜を有さない境界不明瞭な粘膜下の腫瘍性病変で、神経線維腫と診断された。大腸に発生する神経線維腫は極めてまれで、術前診断は困難であるといわれている。今回、下行結腸に発生し腹腔鏡下にて切除した大腸神経線維腫の1例を経験したので報告する。

はじめに

神経線維腫は von Recklinghausen 病での合併がよく知られているが、von Recklinghausen 病を合併しない単発性の大腸神経線維腫は極めてまれである¹⁾。本邦報告例ではこれまでに6例を数えるにすぎない^{1)~6)}。今回、腹腔鏡補助下に切除した下行結腸神経線維腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：71歳、男性

主訴：なし

家族歴：特記事項なし。

既往歴：67歳高血圧、大動脈弁閉鎖不全症。

現病歴：高血圧、大動脈弁閉鎖不全症にて近医を受診中であつた。2004年10月大腸内視鏡検査にて下行結腸に1/3周性の粘膜下腫瘍を指摘された。2006年11月経過観察のための大腸内視鏡検査にて腫瘍は1/2周性まで増大し、壁の伸展性も不良となっていたため、当院消化器科へ精査加療目的にて入院となった。

入院時現症：身長158cm、体重70.3kg、BMI 28.2、体格中等度、栄養状態良好、眼瞼・眼球結膜

に貧血・黄疸なし。呼吸音清で左右差なく、心音にて拡張期逆流性雑音を聴取。腹部理学的所見に異常は認められなかった。また、皮膚にも von Recklinghausen 病 (以下、VRD) に見られる多発腫瘤や色素斑は認められなかった。

入院時検査所見：末梢血液検査では異常を認めず、生化学検査でも肝・腎機能など異常を認めなかった。腫瘍マーカーはCEA 1.05ng/ml、CA19-9 2.00U/mlとともに正常範囲内であつた (Table 1)。

腹部CT所見：下行結腸に明らかな腫瘤は指摘できなかった。

上部消化管内視鏡検査所見：食道、胃、十二指腸に粘膜下腫瘍は指摘されなかった。

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	4,920 / μ l	AST	15 IU/l
RBC	4.90×10^6 / μ l	ALT	10 IU/l
Hb	14.8 g/dl	LDH	137 IU/l
Ht	45.1 %	ALP	241 IU/l
Plt	19.3×10^4 / μ l	AMY	75 IU/l
		BUN	15.4 mg/dl
TP	6.9 g/dl	Cr	0.84 mg/dl
ALB	4.1 g/dl	CEA	1.05 ng/ml
T-Bil	1.10 mg/ml	CA19-9	2.00 U/ml

<2007年9月26日受理>別刷請求先：野中 隆
〒843-0301 嬉野市嬉野町大字下宿丙2436 独立行政法人国立病院機構嬉野医療センター外科

Fig. 1 Barium enema examination showed an elevated tumor in the descending colon (arrow).

Fig. 2 Colonoscopy showed a semicircular submucosal tumor with a central pit in the descending colon.

注腸造影X線検査所見：下行結腸に径約14 mmの立ち上がりになだらかな隆起性病変を認め、粘膜面は平滑であった (Fig. 1)。

大腸内視鏡検査所見：下行結腸に管腔の約1/2周を占める粘膜下の隆起性病変を認め、その中心は陥凹を伴っていたが、粘膜面には不整や発赤・びらんは認められなかった (Fig. 2)。

組織生検を行ったが、軽度の炎症性細胞浸潤を認めるのみで、悪性所見は認められなかった。超音波内視鏡検査も行ったが、下行結腸の病変は腫

Fig. 3 Macroscopic findings of tumor. a : Ulcerated lesion with heaped-up margin is observed in descending colon (arrow). b : Expansion image.

瘤として描出できなかった。

以上より、増大傾向のある下行結腸の粘膜下腫瘍と診断し、悪性化も否定できず、2006年12月腹腔鏡補助下結腸切除術を施行した。

手術所見：下行結腸の病変にはあらかじめ前壁にマーキング目的で点墨を行い手術を行った。腹腔内には腹水なく、明らかな播種像は認められなかった。悪性腫瘍を否定できなかったため、栄養血管である左結腸動脈を根部にて処理しD2郭清とした。脾彎曲部を含め外側授動し腹腔鏡下操作を終了した。臍上下に約5cmの小開腹を行い標本を摘出後、層々吻合にて再建を行い手術を終了した。

切除標本：肉眼的に粘膜のなだらかな立ち上がりとし、中央の陥凹性変化を示す15×10mm大の粘膜下腫瘍性の病変が見られ (Fig. 3a, b)、その割

Fig. 4 Microscopic findings of tumor : The tumor located in submucosa (a : $\times 12.5$). It is formed by a combined proliferation of the elements of Schwann' cells and fibroblasts (b : $\times 40$, c : $\times 200$). Some of tumor cells are immunoreactive for S-100 protein (d : $\times 250$).

面では、粘膜下に 12×2mm 大の境界不明瞭な黄白色調の小結節性病変が認められた。

病理組織学的検査所見：粘膜下の病変は組織学的に被膜を有さない境界不明瞭な腫瘍性病変で (Fig. 4a, b), 紡錘形細胞と膠原線維の増生を伴う浮腫性の基質から成り、紡錘形細胞は波状の核を持つ Schwann 細胞と棍棒様の核を有する線維芽細胞から構成されていた (Fig. 4c)。また、浮腫性の基質には mast cell が散見された。免疫組織化学では紡錘形細胞は、vimentin (+), S-100 (+) (Fig. 4d), actin(-), c-KIT(-), CD34(-)で、mast cell は c-KIT (+)であった。以上より、神経線維腫と診断した。

手術後経過：術後経過は良好で術後 18 日目に退院となった。

考 察

神経線維腫は、主に末梢神経を発生母地とする腫瘍で、好発部位は皮膚や皮下であり、消化管の発生は比較的まれである²⁾。消化管での神経線維腫

は VRD に合併して見られることが多く、胃・十二指腸に好発する³⁾。本例のように VRD を合併しない単発の消化管神経線維腫はまれであり、本邦では 45 例の報告が見られるに過ぎない²⁾。そのなかで、単発性の大腸神経線維腫は極めてまれといわれている¹⁾。本症例では、その後の調査にて詳細な家族歴をとるも、VRD 家系でないことが判明し、全消化管を検索しうるかぎり他病変はなく、VRD を合併しない単発性の大腸神経線維腫であることが再確認された。

我々が医学中央雑誌、JMEDplus で「神経線維腫」かつ「大腸」をキーワードとして 1983 年から 2006 年 12 月までの検索を行った結果、本邦における大腸での詳細な報告例は 6 例であった^{1)~6)} (Table 2)。

消化管神経線維腫の症状としては、腫瘍に併発したびらんや潰瘍からの出血、腫瘍による閉塞または腸重積によるイレウス症状、腫瘤触知が知られているが、発生部位や大きさによりさまざま

Table 2 Neurofibroma of the colon in Japanese literature

No.	Author	Year	Age	Sex	Location	Form	Surface	Size (mm)	Treatment (method)
1	Takemura ³⁾	1977	57	M	A	Isp	smooth	60	OP (laparotomy)
2	Amano ⁴⁾	1991	49	F	R	Isp	pit	40	OP (TEM)
3	Inoue ²⁾	1992	62	M	C	Isp	pit	10	ER (polypectomy)
4	Andou ⁵⁾	1994	80	F	C	type1	irregular	50	OP (laparotomy)
5	Miyazawa ¹⁾	1995	64	M	A	Isp	ulcer	35	OP (laparotomy)
6	Tominaga ⁶⁾	2000	50	M	C	Isp	smooth	3	ER (polypectomy)
7	Our case		71	M	D	IIa+IIc	pit	15	OP (Laparoscopy)

A : Ascending colon C : Cecum D : Descending colon R : Rectum OP : Operation ER : Endoscopic Resection

で²⁾, 本例のように小さければ無症状で偶然に発見されることがある。

神経線維腫は粘膜下層, 固有筋層より発生し粘膜下腫瘍の形態をとり形態の特徴に乏しいため, 神経線維腫に画像上特異的な所見はない。それゆえ, X 線, 内視鏡での術前診断が困難で, 生検などから診断しえたものが散見されるが, ごく少数例に過ぎない⁶⁾。消化管神経線維腫の超音波内視鏡検査は3例が報告されており⁴⁾⁶⁾⁷⁾, その局在は粘膜下層から固有筋層で, 分葉状を呈する境界明瞭な均一低エコー腫瘍と報告されている。本症例は形態としては0-IIa+IIcと表現できるような浅い陥凹を伴う粘膜下隆起性病変で, 粘膜下の腫瘍成分が少なかったためか, 超音波内視鏡検査を施行するも, 粘膜下の腫瘍を指摘できなかった。

神経線維腫の確定診断は病理組織学的検索によるが, その際, 神経鞘腫・神経節腫など他の神経原性腫瘍や筋原性腫瘍との鑑別が必要である¹⁾。神経線維腫は肉眼的には結節病変であり, 組織学的には Schwann 細胞と線維芽細胞, さらに種々の量の膠原線維と粘液状物質を含む基質からなり, 銀染色で神経線維が見られる⁸⁾。筋原性腫瘍との鑑別には S-100 蛋白, actin, desmin などに対する免疫染色が有用で, 他の神経原性腫瘍との組織学的鑑別点は, 腫瘍が被膜を有さないこと, 紡錘形細胞が波状の配列を示すこと, alcian blue 陽性の粘液間質が見られること⁸⁾, 神経節細胞が見られないことなどがあげられる¹⁾。本腫瘍は被膜を有さず, schwann 細胞と線維芽細胞により構成され, またこれらの細胞に柵状配列が見られず, 免疫染色に

て actin 陰性, S-100 蛋白陽性であったことから神経線維腫と診断した。

神経線維腫の治療は, 腫瘍の大きさが 10mm 以上には外科的治療が一般的である¹⁾。過去 6 例の報告によると, 発生部位は全大腸に分布し, 腫瘍の大きさは 3~60mm とさまざまで, 10mm 以下では大腸内視鏡による切除が施行されており, それ以外のものは手術にて摘出されていた。本症例は 15mm の大きさであり, 外科的手術を行ったが, 腹腔鏡補助下の手術の報告例は我々の検索しうるかぎり認められず, 自験例が最初のものであった。開腹手術と比較し腹腔鏡補助下大腸切除術は, 術中出血量は少なく術後在院日数は短い傾向にあり⁹⁾, その低侵襲性により近年導入する施設が増加している。さらに, 腹腔鏡手術では, 血管処理が複雑な末梢レベルより, 中枢レベルでの血管処理のほうが技術的に容易であるといわれ, 郭清度が進むにつれて出血量が少なくなるとの報告もある¹⁰⁾。悪性腫瘍が完全に否定できない自験例のような大腸粘膜下腫瘍に対し腹腔鏡手術は有用であると考ええる。

予後については, 外科的切除により良好な予後が得られるといわれるが³⁾, VRD に合併する場合は悪性化の可能性が高く, その予後も不良で¹¹⁾, 十分な注意を要すると考えられた。

文 献

- 1) 宮沢秀明, 中田健一, 小林智子ほか: 大腸良性神経線維腫の 1 例. Prog Dig Endosc 消内視鏡の進歩 47: 206—207, 1995
- 2) 井上健一郎, 西山高志, 澤 隆文ほか: 内視鏡的に切除しえた盲腸部神経線維腫の 1 例. Gastroen-

- terol Endosc **34** : 130—133, 1992
- 3) 竹村 浩, 諏訪 寛, 大木繁男ほか: 大腸神経線維腫について. 日本大腸肛門病会誌 **30** : 515—519, 1977
 - 4) 天野康雄, 片山信仁, 横瀬紀夫ほか: 直腸神経線維腫の1例. 臨放 **36** : 615—618, 1991
 - 5) 安藤和仁, 工藤 俊, 森 洋幸ほか: 腸重積症を呈した大腸神経線維腫の1例. 日消外会誌 **27** : 2186—2190, 1994
 - 6) 富永 現, 松永厚生, 野村美樹子ほか: 内視鏡的に合併切除した大腸 glomus 腫瘍ならび神経線維腫の1例. Gastroenterol Endosc **43** : 1274—1280, 2001
 - 7) 藤田 博, 加古博史, 三隅厚信ほか: 食道神経線維腫の1治療例—本邦報告例の検討—. 日消誌 **90** : 795—799, 1993
 - 8) 菅井 有, 千葉ゆかり, 高山和夫ほか: 胃神経線維腫の1例—神経線維腫と神経鞘腫の鑑別を中心に—. Gastroenterol Endosc **31** : 3253—3258, 1989
 - 9) 樋口太郎, 大塚幸喜, 藤澤健太郎ほか: S・Rs 大腸癌手術の予後における腹腔鏡補助下手術と開腹手術の検討. 日消外会誌 **39** : 1658—1665, 2006
 - 10) 福長洋介, 東野正幸, 谷村慎哉ほか: 大腸癌の腹腔鏡補助下手術における肉眼的進行度診断と至適リンパ節郭清. 日臨外会誌 **64** : 1835—1841, 2003
 - 11) 橋口陽二郎, 望月英隆: 稀な組織型の大腸腫瘍. 外科治療 **82** : 850—855, 2000

Laparoscopic Surgery for Neurofibroma of the Colon : Report of a Case

Takashi Nonaka, Yoshihito Shibata, Kazuo Tou,
Seiji Honjyou, Shinji Naitou* and Tadayuki Oka
Department of Surgery and Department of Pathology*,
National Hospital Organization Ureshino Medical Center

We report a rare case of solitary neurofibroma of the descending colon. A 71-year-old man admitted for submucosal tumor of the descending colon was found in endoscopic studies to have a semicircular submucosal tumor with a central pit in the descending colon. Neither intraluminal ultrasonography or enhanced computed tomography indicated this tumor. Based on findings, we conducted laparoscopy assisted colectomy, histologically, the tumor of the descending colon had no capsule or border. Based on immunohistochemical studies, the tumor was definitively diagnosed as neurofibroma.

Key words : neurofibroma, colon, laparoscopic surgery

[Jpn J Gastroenterol Surg **41** : 341—345, 2008]

Reprint requests : Takashi Nonaka National Hospital Organization Ureshino Medical Center
2436 Shimosyuku, Ureshino-cho, Ureshino, 843-0301 JAPAN

Accepted : September 26, 2007