症 例

小腸間膜線維腫症の1例

国立病院九州がんセンター病理¹⁾大分市古沢胃腸病院²⁾

林 逸郎¹⁾ 江本 修²⁾ 古沢 毅²⁾
有田 毅²⁾ 工藤 輝俊²⁾ 柴田 興彦²⁾

術中捺印細胞診にて診断し得た49歳、女性、小腸間膜線維腫症を報告する。

腫瘍の大きさは9.5×13, 4.5×6 cm, 卵円形, 黄白色調, 弾性硬であった。浸潤は小腸粘膜下層まで認められた。捺印細胞診では紡錘形, 類円形, 多形の腫瘍細胞が孤立性または少数平面的集合として認められた。細胞質は明瞭で, ライトグリーン淡染性で, その辺縁は細線維状を呈していた。核は卵円形, 短紡錘形で, 核クロマチンは顆粒状であった。明瞭な核小体を有するものが多くみられた。

Key words : Mesenteric Fibromatosis—Cytology—Case Report

緒 言 症 例

腸間膜腫瘍は通常 cystic tumor と solid tumor に大別され, 後者はさらに Fibrous tumors, Xanthogranuloma, Lipomatous tumors, Smooth muscle tumors, Vascular tumors, Nerve cell tumors, Mesenchymoma に分類されている。これらの腫瘍中 Fibrous tumors に属する線維腫症の頻度が高いとされているが, その報告例は少ない。本症は紡錘形細胞の増生からなることより平滑筋腫瘍, 線維肉腫との細胞診学的鑑別は困難である。

われわれは術中捺印細胞診にて診断し得た49歳、女性、小腸間膜線維腫症の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。

患 者: 49歳, 女性, 主婦。

主 訴: 腹部膨満感。

現病歴: 肝硬変にて加療中某医より左下腹部の腫瘍を指摘され, 古沢病院を紹介された。

既往歴: 肝硬変(昭和52年10月より加療中), 左卵巣囊腫(昭和53年2月左卵巣摘出)。

入院時理学的所見: 貧血, 黄疸, 表在リンパ節腫大は認められなかった。胸部の聴診ではう音, 心雑音は聴取されず, 腹部では臍の左方に大きさ11×11.5 cm, 表面平滑, 弾性硬の可動性の腫瘍が触知され, さらに同様の性状を有する腫瘍が下腹部の手術創の右方に沿って認められ, その大きさは約4×5 cmであった。

その他皮膚, 軟部組織には特に異常は認められなかった。

入院時検査所見: 表1参照。

小腸X線像: 下部小腸に管外性の圧排像が認められた(図1)。

血管造影所見: 上腸間膜動脈の分枝である回腸動脈に過伸展がみられ, 腫瘍を囲繞していた。異常血管新生は認めなかった。

胸部X線像: 異常なし。

A case of mesenteric fibromatosis of the small intestine
Itsuro HAYASHI¹⁾, M.D., Osamu EMOTO²⁾, C.T., Takeshi FURUSAWA²⁾, M.D., Takeshi ARITA²⁾, M.D., Terutoshi KUDO²⁾, M.D., Okihiko SHIBATA²⁾, M.D.

¹⁾ Department of Pathology, National Kyushu Cancer Center

²⁾ Furusawa Gastroenterologic Hospital, Ooita City
論文別刷請求先 ☎815 福岡市南区野多目595 九州がんセンター病理

昭和57年3月5日受付

表1 入院時検査所見

血液: RBC 582×10^4 , WBC 4,200, Hb 17.8, Ht 58.9, Platelet 9×10^4
検尿: 蛋白(-), 糖(-), 潜血(-)
検便: 潜血(-), 寄生虫卵(-)
血清生化学: Na 139, K 4.5, Cl 101, Fe 103, TP 7.0 (Alb 52.9, α_1 -G1 2.8, α_2 -G1 7.3, β -G1 19.7, γ -G1 20.6), T.T.T. 5.6, Zn. T.T. 9.6, T. Bil 1.5 (direct 0.8) GOT 17, GPT 18, ALP 18, LAP 286, LDH 160, Amylase 186, GGPT 57, Chole- sterol 164, BUN 18, Creatinine 1, FBS 78, SSTS(-), CRP(-), CEA 1.2

図1 X線像

心電図: 洞性徐脈。

以上の所見より腸間膜腫瘍を疑い, 昭和55年3月28日手術施行。

手術所見: 腹腔内に黄褐色調の腹水の貯留が多量に認められた。胃, 大腸, ダグラス窩には異常なく, 肝は萎縮状, 暗赤褐色調で, 表面は顆粒状を呈していた。脾腫は認められなかった。トライツ靱帯より肛側約90 cmに小児頭大, それより口側20 cmに小児手拳大の腫瘍がみられ, 小腸腸間膜に位置していた。なおリンパ節の腫大は認められなかった。

摘出腫瘍肉眼所見: 大きさ $7.5 \times 9.5 \times 13$, $4.5 \times 6 \times 4.5$ cmの充実性の硬い腫瘍で, 断面は淡黄白色調で, 一部は出血のため茶褐色調を呈し, 交錯状の線維束が認められた。腫瘍は連続性に小腸粘膜下層まで浸潤していた(図2)。

術中腫瘍捺印細胞像: 腫瘍細胞は孤立性または平面的少数集簇として認められた。

腫瘍細胞は紡錘形, 類円形, 多形で, Pap. 染色にてライトグリーンに均質的に淡染性で, 細胞質辺縁は半透

図2 断面所見

図3 2核状類円形細胞と紡錘形細胞
核縁に軽度の陥凹が認められる。
(Pap. 染色, $\times 400$)

明ないし淡明で, 細線維状の毛羽立ちがかなり認められた。核は類円ないし長楕円形, 核クロマチンは顆粒状, 細顆粒状, 分布は比較的均等で, 核縁はわずかな陥凹を認めるも平滑であった。核小体は明瞭なものが多く, 1~2個認められた(図3~7)。なかには核偏在性, 2核状細胞, Tadpole細胞様の細胞も認められた(図5~7)。1部に核分裂も散見された。なお平滑筋肉腫でみられるような連珠細胞, 大型異型細胞, 多核巨細胞は認められなかった。以上の細胞学的所見より小腸間膜線維腫症と診断した。

病理組織学的所見: 紡錘形, 多形または類円形を呈する幼若な線維芽細胞の交錯状増生が認められた。核は紡錘形, 長楕円形, 類円形で, 核縁に軽度の陥凹を認めるも比較的平滑であった。核小体は明瞭で, 1ないし2個

図 4 紡錘形細胞の少数集簇
(Pap. 染色, $\times 400$)

図 6 2核状細胞 (Pap. 染色, $\times 400$)

認められた。細胞質辺縁は細線維状で、細胞境界は不明瞭であった。一部には核分裂も散見された(図8, 9)。

Azan-Mallory 染色にて青染する膠原線維が腫瘍細胞間に認められた。

浸潤は小腸間膜は着側から粘膜下層まで連続性にみられた。

以上の所見から小腸間膜線維腫症と診断した。

考 察

腸間膜線維腫症の発生頻度は Yannopoulos らによれ

図 5 類円形細胞と多形細胞
核は卵円形, 偏在性, 核小体は明瞭。
(Pap. 染色, $\times 400$)

図 7 Tad-pole 状細胞 (Pap. 染色, $\times 400$)

ば腸間膜 solid tumor の44例中12例(27.2%)⁸⁾, 野村らによれば86例中9例(10.1%)とされ⁵⁾, 脂肪腫とともに頻度の高い腫瘍である。その好発部位は本例のごとく小腸間膜で、特に回盲部に多いとされている。

組織発生は不明であるが、腹部手術がその誘因のひとつとして想定されている^{4,6)}。本例も1年前に左卵巢囊腫摘出術の既往があり、本症の発生を考慮する上で腹部手術との関連は無視できないようである。また種々の皮下、軟部腫瘍, Gardner 症候群のような家族性腸ポリープを合併する場合と非合併例があるとされるが⁶⁾, 本例

図8 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

では前述の合併症は現時点では認められていない。

本症の主訴としては、腫瘍触知または腫瘍増大浸潤による他臓器圧迫症状がほとんどで、腫瘍がかなり大きくなって初めて気づかれた例が多いようである。

本症と鑑別すべき腫瘍としては平滑筋腫瘍と線維肉腫であるが、細胞像での鑑別は必ずしも容易ではない。平滑筋肉腫の細胞学的特徴として山田らは連珠細胞、多核細胞を⁷⁾、Hadju らは不明瞭な細胞質、細胞質の保存の悪さ、medium mononuclear round or oval cells, multinucleated bizarre giant cells が多いとし²⁾、Crabe-Fiol らは、(1) spindle-shaped cells with malignant looking nuclei, (2) cells with extremely long, fiber-like cytoplasm and hyperchromatic nuclei, (3) large, anaplastic malignant cells が混在することをあげている¹⁾。

本例では連珠細胞、異型大型細胞、多核巨細胞はみられず、細胞質も比較的明瞭で、保存もよく、また平滑筋腫瘍ほど長紡錘状のものはあまり認められず、長楕円、類円形の核もかなり混在していたことより、平滑筋腫瘍より線維芽細胞由来の腫瘍が考えられた。

線維肉腫とは細胞異型が軽度であること、細胞密度もそれほど高くないこと、核分裂もごく一部の細胞に認められたのみであったことなどから鑑別は可能であったが、異型の少ない紡錘形細胞よりなる高分化型線維肉腫との鑑別は組織学的にもしばしば困難とされ、そのような症例においては細胞診での両者の鑑別は不可能であり、転移の有無のみが唯一の鑑別点であろう。また本例での細胞学的特徴として細胞質はライトグリーンに均質状に淡染、細胞質辺縁は細線維状、核偏在性のもののがかなり認められること、核小体は明瞭であることなどであったが、果たしてこれらの細胞学的所見が腸間膜線維腫症に共通の特徴であるか否かはさらに多数例での比較検討が必要であろう。

本症の治療としては腫瘍を完全に摘出することである

図9 線維芽細胞の交錯状増殖 (H-E 染色, ×200)

が、しばしば巨大になって来院するために完全摘出が不可能になる場合があり、そのような例では腫瘍残存による再発の可能性があると考えられている。

予後は良好で、Kim らは5年以上経過しても9例中4例は再発はみられなかったとし³⁾、また Yannopoulos らは10例中9例は明らかに治癒し、1例のみが腫瘍残存による死亡例であったが、明らかな悪性所見は認められなかったとしている⁸⁾。

結 語

49歳、女性の小腸間膜線維腫症の1例を報告し、その細胞学的鑑別を主として若干の文献的考察を加えて報告した。

なお本論文の主旨は第22回日本臨床細胞学会総会（於東京）において発表した。

Summary

The occurrence of the mesenteric fibromatosis is rare. The mesenteric fibromatosis of 49 year-old female positively diagnosed by imprint cytodiagnostic procedure during operation is reported hereinafter.

The tumors were 9.5×13, 4.5×6 cm in size, oval shaped, light yellowish-white in colour and elastic hard in consistency, which invaded submucosal layer of the small intestine.

Imprint cytodiagnosis revealed that the tumor cells were spindle, pleomorphic and round in shape and scattered isolatedly or in small groups.

The cytoplasm were distinct, stained light green by Papanicolaou's staining method, and their margin showed fine fibrillary pattern.

Their nuclei were oval or short-spindle shaped, and chromatin pattern were granular with prominent nucleoli.

文 献

- 1) Crabe-Fiol, V., Vilardell, F., Sala-Cladera, E., and Perez Mota, A. : Preoperative cytological diagnosis of gastric leiomyosarcoma, *Gastroenterology*, 68 : 563~566, 1975.
  - 2) Hadju, S.I., Hadju, E.O. : Exfoliative Cytology of Malignant Lymphoreticular, Soft Tissue, and Bone Neoplasms, *Pathology Annual (Vol. 11.)* : 317~334, 1976, Appleton-Century-Crofts, New York.
  - 3) Kim, Dong-Heup, Goldsmith, H.S., Quan, S.H., and Huvos, A.G. : Intra-abdominal Desmoid Tumor, *Cancer*, 27 : 1041~1045, 1971.
  - 4) Mackenzie, D.H. : The Differential Diagnosis of Fibroblastic Disorders, 86~89, Blackwell Scientific Publications, Oxford and Edinburgh, 1970.
  - 5) 野村英雄, 斎藤浩司, 前田澄男, 市場正敏 : 腸間膜腫瘍の2例, *外科*, 25 : 1008~1012, 1963.
  - 6) Simpson, R.D., Harrison, E.G., Jr., and Mayo, C. W. : Mesenteric fibromatosis in familial polyposis, *Cancer* 17 : 526~534, 1964.
  - 7) 山田 喬, 垣花昌彦, 小崎伊佐夫 : 非上皮性腫瘍の剝離細胞診, *日臨細会誌*, 13 : 139~155, 1974.
  - 8) Yannopoulos, K. & Stout, A.P. : Primary Solid Tumors of the Mesentery, *Cancer* 16 : 914~927, 1963.
-