鎖骨上窩に発生したデスモイド腫瘍の2例

日赤長崎原爆病院整形外科

杉山正泰・河野昌文

大坪義昌・原寛徳

広田康徳・田口厚

長崎大学医学部整形外科

平野徹

五島中央病院整形外科

中村昌一

Two Desmoid Tumors of the Supraclavicular Fossa

by

Masayasu Sugiyama, Masafumi Kono, Yoshimasa Ohtsubo,

Hironori Hara, Yasuhiro Hirota and Atsushi Taguchi

Department of Orthopaedic Surgery,
Japanese Red Cross Nagasaki Atomic Bomb Hospital

Toru Hirano

Department of Orthopaedic Surgery, Nagasaki University,
School of Medicine

Masaichi Nakamura

Department of Orthopaedic Surgery, Goto Chuo Hospital

We studied the MRI findings of 2 desmoid tumors in the supraclavicular fossa. One case was a 30 year-old woman and another was a 22 year-old man. The Tumor of Case 1 consisted almost totally of collagen fibers and showed a low signal intensity in both T1 and T2-weighted images. In comparison, the tumor of case 2 was found to be more hypercellular, similar to a benign fibrous histiocytoma. The intensity of both T1-weighted and T2-weighted images of Case 2 was higher than those of Case 1. MRI was available to evaluate the extent of the tumor, but no specific signal intensity was noted.

Key words : Desmoid Tumor (デスモイド腫瘍), Supraclavicular fossa (鎖骨上窩), MRI findings (MRI 所見), Histological findings (組織学的所見)

はじめに

MRI の有用性について検討した。

デスモイド腫瘍は良性腫瘍ではあるが、浸潤性に発育するため臨床的に悪性軟部腫瘍との鑑別が困難である。今回我々は、鎖骨上窩に発生した極めて稀なデスモイド腫瘍を2例経験した。そこで、それらのMRI画像と組織学的所見とを対比し、術前診断における

症 例

症例1：30歳、女性。

主訴：左鎖骨上窩の腫瘤。

家族歴および既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成6年3月19日、誘因なく左鎖骨上窩

の無痛性鶏卵大の腫瘤を認めた。増大傾向があり近医受診。平成6年4月27日、悪性腫瘍を疑われ、当科紹介された。

臨床および画像所見：腫瘤は鶏卵大、弾性硬、可動性は殆どなく、自発痛、圧痛は認めなかった。転移性腫瘍の可能性もあり、各種腫瘍マーカーを検索したが異常は認めなかった。胸部X線、CT および血管造影所見でも悪性像はみられなかった。

MRI では腫瘤は前鋸筋部に存在し、T1 強調像にて筋肉とほぼ等信号、T2 強調像でも筋肉とほぼ同じ低信号を示す $5 \times 6 \times 4$ cm の軟部腫瘤が認められた。辺縁平滑、内部性状は均一であった。腫瘤辺縁には低信号域が認められ、周囲組織を圧排している可能性が示唆された。造影 MRI では、内部は均一に造影された (図1)。

手術では、左頸部より鎖骨を通り腋窩に到る皮切でアプローチし、鎖骨の骨切りを行った。腫瘍上に肩甲上神経が騎乗しており腕神経叢、鎖骨下動静脈は前下方に圧排されていた。腫瘍摘出は周囲筋組織をさくよ

うに大部分を広汎切除縁で一部を辺縁切除縁で行った。肉眼的に、腫瘍は $5 \times 6 \times 4$ cm で、被膜はなく前鋸筋に埋没した灰白色の充実性腫瘍であった (図2)。組織学的には、わずかに小血管を混在する膠原線維の束状組織で、悪性所見は認めなかった (図3)。

症例2：22歳、男性。

主訴：右鎖骨上窩腫瘍。

家族歴および既往歴：特記すべき所見なし。

現病歴：平成2年4月頃より、誘因なく無痛性の右鎖骨上窩腫瘍を自覚するようになったが、そのまま放

図2 症例1の肉眼所見。

- a. 腫瘍は $5 \times 6 \times 4$ cm, 被膜は認めなかった。
b. 断面は光沢のある灰白色であった。

図1 症例1のMRI所見。

- 筋肉とほぼ等信号で、内部は均一に造影された。
a. T1 強調像 (SE500/20), coronal 像。
b. Gd-DTPA 造影像 (SE600/20), coronal 像。
c. T1 強調像 (SE600・20), axial 像。
d. T2 強調像 (SE2000/80), axial 像。

図3 症例1の病理組織所見。

ほとんど膠原線維の束状増生からなり、わずかに小血管を混在していた (H. E. $\times 100$)。

置していた。平成3年9月腫瘍の増大傾向を認めたため近医受診。同年11月悪性腫瘍を疑われ当院紹介受診。

臨床および画像所見：腫瘍には自発痛や圧痛は無く、可動域は殆ど無かった。血液検査では、腫瘍マーカーも含めて異常はみられなかった。

胸部X線で右鎖骨上窩に軟部腫瘍陰影を認め、それによる肩甲骨・肋骨間の拡大を認めた。CTでは、境界比較的明瞭な軟部組織陰影が認められた。血管造影所見は、軽度の血管新生像と鎖骨下動脈の圧排像を認めた。

MRIでは、腫瘍は鎖骨、肩甲骨、肋骨に囲まれて前鋸筋部に存在していた。T1強調像にて筋肉よりやや高信号、T2強調像では脂肪とほぼ同じ高信号を示した。内部性状は一部不均一な部分があった。周囲との境界は大部分鮮明であったが、筋肉の走行方向では不鮮明となっており、周辺組織への浸潤、右鎖骨下動・静脈などの圧排も示唆された(図4)。

手術では、右頸部後方より鎖骨を越え前胸部外方へ到る皮切を加え、鎖骨のほぼ中央で骨切りを行った。腫瘍は鎖骨上窩から肩甲骨の間に存在し、腕神経叢を右鎖骨下動静脈とともに前下方に圧排していた。症例1より、筋線維方向での浸潤が強かったが、 $10 \times 7 \times 11\text{cm}$ 、325gの腫瘍を大部分辺縁切除縁、一部広汎切除縁で摘出した。被膜は認めず、断面はやや黄色みを帯びていた(図5)。組織学的には、骨格筋を巻き込んで、束状～不規則に線維芽細胞の密な増生と、膠原線維の増加がみられた。異型核分裂は認めず悪性の所見はなかった(図6)。

図4 症例2のMRI所見。

T1強調像で筋肉よりやや高信号、T2強調像では脂肪とほぼ同じ高信号であった。

- a. T1強調像 (SE769/25), coronal像。
- b. T2強調像 (SE3076/90), coronal像。
- c. T2強調像 (SE3076/90), axial像。

図5 症例2の肉眼所見。

- a. 腫瘍は $10 \times 7 \times 11\text{cm}$ 、325g、被膜は認めなかった。
- b. 断面は症例1より黄色を帯びていた。

図6 症例2の病理組織所見。
a. 膠原線維および線維芽細胞の増生が認められた。
b. 脂肪を貪食したような組織球様細胞を多数含む部分を示す (H. E.×200)。

考 察

デスモイド腫瘍は、骨格筋組織および筋腱膜より発生する稀な良性腫瘍で、Packら⁶⁾によると全腫瘍の0.03%、腹壁外デスモイド腫瘍は、全繊維組織性腫瘍の3.5%と報告している。鎖骨上窩に発生する腹壁外デスモイド腫瘍は極めて稀で、Enzingerら¹⁾による8例、Faschingら²⁾による9例(腹壁外デスモイド腫瘍の5.5%)等の報告がある程度であり、その臨床的に有用な術前診断法についてはほとんど検討されていない⁵⁾⁸⁾。このためデスモイド腫瘍は、臨床的に悪性腫瘍との鑑別がしばしば問題となっている。

最近開発されたMRIは、各種病変の診断に対する有用性が認められている。そこでデスモイド腫瘍の診断にMRIがどの程度有用であるのか検討した。その結果、我々の2症例では病変の広がりには正確に判定できていた。しかし、その性状・信号強度はともに異なっていた(表1)。すなわち症例2の方が症例1よりT1・T2強調像ともに高信号を呈していた。この理由として組織学的に症例1がほとんど膠原線維のみにて構成されていたのに対し、症例2はその構成成分に脂肪を貪食したような組織球様細胞を多数含んでいたことによると考えた。デスモイド腫瘍のMRI所見の症例報告も散見されるが、その信号強度は一定していなかった(表2)³⁾⁴⁾⁵⁾⁷⁾。従って我々はMRIのみで

表1 2症例のMRI所見

MRI 所見	症例 1	症例 2
内部性状	均一	一部不均一
辺縁	平滑	一部不整
信号強度		
T1 筋肉に比し	等信号	やや高信号
脂肪に比し	低信号	やや低信号
T2 筋肉に比し	等信号	高信号
脂肪に比し	低信号	低信号

表2 デスモイド腫瘍のMRI

信号強度	Quinns ら (26 例)	櫛橋ら (4 例)	入江ら (4 例)	宮田ら (1 例)
T ₁ (筋肉に比し)	高～低	等～低	等	やや高
T ₂ (筋肉に比し)	高～等	高～低	高	高

デスモイド腫瘍の診断を下すことは困難であると結論づけた。診断確定のため術前の生検は必須であろう。

デスモイド腫瘍の治療における第1選択は広範囲切除であるが、筋線維の方向へ広く浸潤するというその腫瘍の性格上、辺縁切除や腫瘍内切除に終わることも多く、再発率の高さが問題となっている。特に、本報告のような鎖骨上窩発生例においては、腫瘍が腕神経叢や鎖骨下動静脈などの重要臓器に浸潤していることが多く不完全切除に終わることも多い。そのためにもデスモイド腫瘍の早期診断は重要であるが、それは今

後の課題として残された。

ま と め

1) 鎖骨上窩に発生したデスモイド腫瘍2例のMRI所見と組織学的所見を対比した。

2) MRI所見は、症例により異なる信号強度・性状を示し、その違いは細胞密度及び構成細胞の差によるものと思われた。

3) MRIはデスモイド腫瘍の質的診断には、あまり有用とはいえなかったが、腫瘍の浸潤度を知るのには役立った。

参 考 文 献

1) Enzinger, F. M., Shiraki, M.: Musculo-aponeurotic fibromatosis of the shoulder girdle (Extra-Abdominal Desmoid). *Cancer*, 20: 1131-1140, 1967.

2) Fasching, M. C., Saleh, J., Woods, T. E.: Desmoid tumors of the head and neck. *Am J Surg*, 156: 327-331, 1988.

3) 入江健夫他: 腹壁外デスモイドのMRI. *臨放*, 36: 1547-1550, 1991.

4) 柳橋民夫他: デスモイド腫瘍のMRImagingとCTの比較. *日本医放会誌*, 53: 526-534, 1993.

5) 宮田左門他: 右鎖骨上窩に発生したデスモイド腫瘍の1例. *癌の臨床*, 39: 1177-1182, 1993.

6) Pack, G. T., Ehrlich, H. E.: Neoplasms of anterior abdominal wall with special consideration of desmoid tumors: experience with 391 cases and collective-review of the literature. *Int Abstr Surg*, 79: 177-198, 1944.

7) Quinn, S. F., et al.: MRImaging in fibromatosis: Result in 26 patients with pathologic correlation. *A. J. R.*, 156: 539-542, 1991.

8) 清水淳三他: 鎖骨下領域に発生した巨大デスモイド腫瘍の1切除例. *外科*, 53: 1105-1107, 1991.