症 例

腹壁に発生した滑膜肉腫の1例

寺岡記念病院外科, 香川県立中央病院外科*

赤坂尚三 葉山牧夫 高木章司
中島正雄 小野田裕二*

症例は59歳, 男性。平成8年11月, 近医にて左下腹部腫瘍を指摘され当院へ紹介された。左下腹部に4×3 cm大の弾性硬, 可動性のない腫瘍を触知した。単純CTでは, 左腸骨稜上縁の高さで腫瘍の左外方は腹筋に接する境界明瞭な腫瘍を認めた。ダイナミックCTでは腫瘍の前外方が強く丸く染まり, 腫瘍の外側にdraining veinを同定できた。MRIではT1強調像, T2強調像ともheterogeneousな腫瘍を認めた。経皮的針生検では, 紡錘形細胞を主体とする間葉系腫瘍が疑われた。左傍腹直筋切開で開腹した。腫瘍は腹膜と腹横筋の間に存在し, 2 cmのmarginをとって腹横筋, 内腹斜筋とともに切除した。病理組織学的には, 単相型滑膜肉腫であった。術後2年6カ月間再発を認めていない。滑膜肉腫は比較的若い年代層の大関節近傍に好発する肉腫で, 腹壁に発生することは稀である。ダイナミックCTにて血流の豊富な腫瘍として描出され, 腫瘍の内部構造が良く反映されていた。

索引用語: 滑膜肉腫, 腹壁

はじめに

滑膜肉腫は比較的若い年代層の大関節近傍に好発する肉腫であり, 腹壁に発生することは稀である。われわれは腹壁に発生した単相型滑膜肉腫の1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 59歳, 男性。

主訴: 左下腹部腫瘍。

既往歴: 18歳虫垂切除術, 50歳頃から高血圧症。

家族歴: 特記すべきことなし。

喫煙歴: 30本/日×30年。

現病歴: 高血圧症にて近医通院中, 左下腹部腫瘍を指摘された。平成8年11月12日, 精査加療目的にて当院へ紹介された。

入院時現症: 身長153cm, 体重38.5kg。栄養状態は良好, 眼球結膜に貧血, 黄疸を認めなかった。表在リンパ節は触知しなかった。左下腹部に, 4 cm大, 卵円形, 境界明瞭, 弾性硬で可動性のない腫瘍を触知した。

入院時検査所見: 末梢血液検査, 生化学検査では, 異常を認めなかった。腫瘍マーカーでは, CEA 8.7ng/

mlと上昇していた。CA19-9は正常であった。

腹部CT検査: 単純CTでは, 左下腹部に左腸骨稜上縁の高さで腫瘍の左外方は腹筋に接し, 小腸を内方に圧排する境界明瞭な腫瘍を認めた。腫瘍内部に石灰化はなかった(図1a)。ダイナミックCTでは, 両側腸骨動脈が濃染したスライス(図1b)から, 4.5秒遅れて腫瘍の前外方が極めて強く丸く染まった。腫瘍は被膜を有し, 内部, 辺縁の一部に染まりの弱い部分, また不染な部分もあった(図1c)。これより更に4.5秒遅れて腫瘍の染まりは最大となり, 腫瘍の外方に血管が染まり始め, 腫瘍のdraining veinと思われた(図1d)。

腹部MRI検査: T1強調像で筋肉よりもhigh intensity, T2強調像でもhigh intensityでheterogeneousな腫瘍を認めた。腫瘍の辺縁は平滑で腹膜腔内臓器への浸潤はなかった(図2a, b)。

腫瘍から施行した経皮的針生検では, 紡錘形細胞を主体とする間葉系腫瘍が疑われた。なお, 肺野, 上部および下部消化管に異常を認めなかった。以上から, 腹腔内もしくは腹壁に発生した腫瘍で, 悪性腫瘍である可能性も念頭において平成8年11月21日に手術を施行した。

図1 腹部CT検査：単純CTでは、左腸骨稜上縁の高さで腫瘤の左外方は腹筋に接する境界明瞭な腫瘤を認める(a)。ダイナミックCTでは、両側腸骨動脈が濃染したスライス(b)から、4.5秒遅れて腫瘤の前外方が極めて強く丸く染まっている。腫瘤は被膜を有し、内部、辺縁の一部に染まりの弱い部分、また不染な部分を認める(c)。これより更に4.5秒遅れて腫瘤の染まりは最大となり、腫瘤の外方に血管が染まり始め(矢印)、腫瘤のdraining veinと解釈される(d)。

a	b
c	d

手術所見：左傍腹直筋切開にて開腹した。腫瘍は腹腔内へ結節状に突出し、腹膜に覆われて腹膜と腹横筋との間に存在していた。腫瘍の腹腔内臓器への直接浸潤はなかった。しかし、腫瘍と腹横筋の間に可動性はなく、腹横筋への癒着あるいは浸潤が疑われたため、腫瘍から2 cmのmarginをとって腹横筋、内腹斜筋とともに切除した。

摘出標本：腫瘍は大きさ4.5×4.0×3.5cm大、被膜に包まれ、灰白色結節状の部分と、出血、壊死を伴った暗赤色の貯留液が存在した部分が存在した(図3)。

病理組織所見：腫瘍は限局性病変で、紡錘形細胞が細い束を形成して増殖するとともに、一部ではややsheat状になっていた(図4a)。また一部では結節状になっていた(図4b)。明らかな腺管形成はなく、腫瘍細胞は、比較的均一であった。mitosisを認め、視野により多寡があるが、多い所で強拡大あたり1ヶ認めた。

免疫染色：keratin, EMAが陽性でありvimentin, actin, S100が陰性であった。以上から、本症例は単相型滑膜肉腫と診断された。

術後2年6ヵ月現在無再発生存中である。術前高値だったCEAは5.8ng/dlから9.4ng/dlの間で変動している。

考 察

滑膜肉腫は若年成人の大関節近傍の軟部組織に好発する肉腫であり、腹壁に発生する滑膜肉腫は稀で全滑膜肉腫の2.6%と報告されている¹⁾。検索しえた限りでは本邦、海外を合わせて46例の報告例があった^{2)~15)}。

年齢分布は、8歳から60歳、平均30歳であった。20歳以下は14例、21歳から40歳以下は16例、41歳以上は14例であった。8歳から60歳までほぼ均一な年齢分布であった。自験例は、59歳と比較的高齢であった。性差は、1:1.2とやや女性に多かった。症状は、腫張、痛み、圧痛などがある。圧痛は、腫張よりも遅くに出

図2 腹部MRI検査：T1強調像で筋肉よりも high intensity で(a)，T2強調像でも high intensity で heterogeneous な腫瘤を認める(b).

図3 摘出標本：腫瘍は大きさ4.5×4.0×3.5cm大，被膜に包まれ，灰白色結節状の部分と，出血を伴った暗赤色の貯留液を認める。

現する症例が多い⁵⁾。来院時の最大腫瘤径は，1.5cm から21cmで，平均6.4cmであった。

腫瘍の腹部での発生部位は，上腹部14例（右上腹部7例，左上腹部4例，心窩部3例），下腹部19例（右下

図4 病理組織学的所見（HE染色，×20）：腫瘍は限局性病変であり，紡錘形細胞が細い束を形成して増殖する部分(a)と結節状部分(b)を認める。

a
b

腹部8例，左下腹部6例，右鼠径部3例，左鼠径部1例，恥骨上部1例）であった。腹部の右側が18例，左側が11例であった。記載の明らかな症例が13例であった。

腹壁での腫瘍の局在部位は，皮下組織内に発生した症例²⁾，内腹斜筋と腹横筋に浸潤していた症例⁹⁾，内腹斜筋と腹横筋の間に発生した症例⁹⁾，腹直筋内に発生した症例¹¹⁾，腹直筋から右外腹斜筋の筋繊維間に発生した症例¹⁵⁾，自験例と同じく腹膜と腹横筋の間に存在していた症例⁶⁾などであった。自験例では術前に腫瘍の局在を明確に同定できていなかった。しかし retrospective にみると，MRI T1強調像で，右側の腸管は外に向かい凸面を形成しておりこの外側は腹膜前脂肪組織が厚く存在している。一方，左側では更に厚い脂肪組織があり腫瘍を内側から取り囲み腸管と腫瘍の間にも脂肪が認められる。exophytic に発育した消化管由来の腫瘍の可能性は残るが，腹膜前脂肪組織内または腹壁（腹筋，腹膜など）から内方へ発育した腫瘍と考える方が自然と思われた。

腹壁に発生した滑膜肉腫の画像上の特徴として特異

的なものはないが、以下のことが報告されている。腫瘍が9~10cmと大きくなると石灰化³⁾⁶⁾⁹⁾や嚢胞形成³⁾⁹⁾が認められる症例が多くなる。したがって、CTにて石灰化や嚢胞形成を呈する症例⁹⁾も報告されている。腹壁に発生した滑膜肉腫のMRIに関する報告例はなかった。他部位に発生した滑膜肉腫のMRIの所見として、内部 heterogeneous で、腫瘍内の出血に対応した fluid-fluid levels や、mixed-signal appearance などが認められることが報告されている¹⁶⁾¹⁷⁾。Malignant fibrous histiocytoma や soft tissue hemangioma でも同様な MRI 所見を呈することがあるのでその鑑別には注意を要する¹⁸⁾。自験例はMRI上内部 heterogeneous であったが、腫瘍径が比較的小さかったこともあり fluid-fluid levels や mixed-signal appearance といった所見はなかった。

自験例はダイナミックCTで腫瘍の内部構造が最も良く反映されていた。腫瘍の前外方で極めて強く丸く染まった部分は摘出標本で灰白色結節状の部分であり、不染な部分は摘出標本で出血、壊死を伴った部分であると推定された。Nogel ら¹⁹⁾は、腰部に発生した滑膜肉腫の血管造影において腫瘍は hypervascular であったと報告している。自験例は、ダイナミックCTにて hypervascular な腫瘍であることがとらえられ、腫瘍の draining vein も同定することが可能であり、有用な検査であった。

自験例と同様に hypervascular な画像所見を呈する腫瘍として hemangiopericytoma, angiosarcoma などの血管原性腫瘍なども考えられる。腹壁に発生した滑膜肉腫の術前診断が可能であった症例は本邦報告例にはなく、その発生頻度が少ないことから術前診断は困難と思われる。

組織型では、monophasic 8例, biphasic 28例, poorly differentiated 5例, 不明5例であった。biphasic type が多かった。monophasic type は、自験例が本邦で初めての報告例であった。

一般に、腹壁には滑膜あるいは粘液嚢構造などは認められない。自験例でも腫瘍組織中にそれらを示唆する組織の遺残は認められていない。滑膜肉腫の組織発生については明らかではないが、関節や滑膜と直接の関係をもたない腹壁における発生に関しては、全身に存在する未分化間葉組織から発生したと考えるのが好都合とされている⁸⁾。

治療は、手術による切除が44例に施行された。化学療法や放射線療法も試みられた症例¹¹⁾¹³⁾¹⁴⁾もあるが有

効性は定かでない。一般の滑膜肉腫では、化学療法が有用との報告もある²⁰⁾。

一般の滑膜肉腫の予後増悪因子として、腫瘍径が5cm以上の症例、10 mitosis per 10 hpf 以上を有する症例、顕微鏡下に切除断端陽性であった症例、が報告されている²¹⁾。自験例は、腫瘍から2cmのmarginをとって腹横筋、内腹斜筋とともに切除した。腫瘍の切除範囲に関して一定の見解はないが、顕微鏡下に切除断端陽性とならないよう十分なmarginをとる必要がある。

局所再発例は16例あり、再発までの期間は、252カ月であった1例を除くと2カ月から58カ月、平均16カ月と術後早期の局所再発が多かった。一方で術後5年から10年の間にも再発死亡例がみられる¹³⁾ので、長期に亘る経過観察が必要である。一般の滑膜肉腫の予後は5年生存率25.2%²²⁾~60%²¹⁾であり、腹壁に発生した滑膜肉腫の予後は一般の滑膜肉腫と変わらないとされている¹³⁾。

結 語

腹壁発生した単相型滑膜肉腫の1例を経験した。手術で完全摘出され術後2年6カ月現在無再発生存中である。自験例はダイナミックCT上 hypervascular な腫瘍であり、腫瘍の内部構造が最も良く反映されていた。

本稿を終えるにあたり、御指導を賜りました岡山大学第2病理学教室、吉野 正先生に深甚なる謝意を捧げます。

文 献

- 1) Enzinger FM, Weiss SW: Synovial sarcoma. In: Soft tissue tumors. 2nd ed. CV Mosby, St Louis, 1988, p659—688
- 2) Murphy SE, Margarit E: Synovial sarcoma of the anterior abdominal wall. Ann Surg 168: 928—930, 1968
- 3) Hale JE, Calder IM: Synovial sarcoma of the abdominal wall. Br J Cancer 24: 471—474, 1970
- 4) Katenkamp D, Stiller D: Synovial sarcoma of the anterior abdominal wall. Virchows Arch (Pathol Anat) 388: 349—360, 1980
- 5) Al-Dewachi HS, Sangal BC, Zakaria MAK: Synovial sarcoma of the abdominal wall: A case report and study of tumor fine structure. J Surg Oncol 17: 297—308, 1981
- 6) Faeber EN, Leonidas JC, Bhan I: Synovial sarcoma of the anterior abdominal wall.

- Mount Sinai J Med 51 : 705—706, 1984
- 7) Roth A : Recurrence of synovial sarcoma of the abdomen in a 10 year old child. Path Res Pract 179 : 673—675, 1985
- 8) 林 雄三, 笹尾哲郎, 藤田 毅他 : 腹壁に発生した滑膜肉腫の一例. 癌の臨 32 : 95—100, 1986
- 9) 片村 宏, 杉山 貢, 土屋修二 : 腹壁に発生した滑膜肉腫の1例. 日臨外医会誌 52 : 2188—2192, 1991
- 10) 勝峰康夫, 山本敏雄, 北村 純他 : 腹壁より発生した滑膜肉腫の1例. 日臨外医会誌 53 (増刊号) : 353, 1992
- 11) 若杉英二郎, 山田克己, 福島幸男他 : 腹壁再発の滑膜肉腫の1例. 伊丹病誌 7 : 10—13, 1992
- 12) 佐々木章公, 石根典幸, 広瀬 清他 : 局所再発の診断にMRIが有用であった腹壁滑膜肉腫の一例. 日臨外医会誌 54 (増刊号) : 411, 1993
- 13) Fetsch JF, Meis JM : Synovial sarcoma of the abdominal wall. Cancer 72 : 469—477, 1993
- 14) 鹿島健司, 松下 央, 黒田雅彦他 : RT-PCR 法により t (x : 18) を証明しえた前腹壁原発の滑膜肉腫の1例. 日整外会誌 70 : 111, 1996
- 15) 星さをり, 岡田 基, 桜井義一他 : 腹壁原発滑膜肉腫の1例. 日臨細胞会誌 37 : 205, 1998
- 16) Morton MJ, Berquist TH, McLeod RA, et al : MR imaging of synovial sarcoma. AJR 156 : 337—340, 1991
- 17) Jones BC, Sundaram M, Kransdorf M : Synovial sarcoma : MR imaging findings in 34 patients. AJR 161 : 827—830, 1993
- 18) Pomeranz SJ : The musculoskeletal system. In Gamuts & Pearls in MRI. 2nd ed, Cadmus Fine Books, Virginia, 1993, p329—336
- 19) Nogel P, Mockwitz J : Angiographische befunde bei einem synovial sarkom. Fortschr Roentgenstr 118 : 219, 1973
- 20) Kampe CE, Rosen G, Eilber F, et al : Synovial sarcoma : A study of intensive chemotherapy in 14 patients with localized disease. Cancer 72 : 2161—2169, 1993
- 21) Singer S, Baldini EH, Demetri GD, et al : Synovial sarcoma : Prognostic significance of tumor size, margin of resection, and mitotic activity for survival. J Clin Oncol 14 : 1201—1208, 1996
- 22) Cadman NL, Soule EH, Kelly PJ : Synovial sarcoma : an analysis of 134 tumors. Cancer 18 : 613—627, 1965

MONOPHASIC SYNOVIAL SARCOMA ARISING ON THE ANTERIOR ABDOMINAL WALL
—A CASE REPORT—

Syozo AKASAKA, Makio HAYAMA, Syoji TAKAGI,
Masao NAKASHIMA and Yuji ONODA*
Department of Surgery, Teraoka Memorial Hospital
*Department of Surgery, Kagawa Prefectural Central Hospital

A 59-year-old man was admitted to our hospital because of a left lower-quadrant abdominal mass. General examination was negative except for a firm, smooth, fixed mass 4×3 cm in size situated in the left lower quadrant of the abdominal wall. Abdominal CT revealed a well-defined tumor, which compressed the small intestine, and attached to the abdominal wall muscle at the level of the iliac crest. Dynamic CT revealed a hypervascular and capsulated tumor, which was enhanced heterogeneously, and had a very high-density area with an oval shape. Abdominal MRI revealed a heterogeneous mass both on T1 and T2 weighted images. Needle biopsy suggested a fibrous tumor. During operation, the tumor was found to arise on the inner surface of the anterior abdominal wall. Resection en bloc with peritoneum, transversus muscle, and internal oblique muscle with a 2 cm surgical margin was carried out. The cut surface of the tumor was of a multinodular configuration, with solid nodules and hemorrhage. The histological diagnosis was monophasic type synovial sarcoma. Synovial sarcoma is a malignant soft-tissue tumor arising in the vicinity of joints, and reported examples arising in the anterior abdominal wall are rare. Dynamic CT was very useful and well correlated with the morphologic appearance.