

腹腔鏡下に摘出しえた上行結腸間膜発生の Castleman 病の 1 例

西江 学^{a*}, 大塚真哉^a, 友田 純^b, 藤原敬士^c

国立病院機構福山医療センター ^a外科, ^b内科, ^c光生病院 内科

Laparoscopic surgery for mesenteric Castleman's disease

Manabu Nishie^{a*}, Shinya Otsuka^a, Jun Tomoda^b, Keishi Fujiwara^c

Departments of ^aSurgery, ^bInternal Medicine, Fukuyama Medical Center, Hiroshima 720-8520, Japan

^cDepartment of Internal Medicine, Kousei Hospital, Okayama 700-0985, Japan

We report herein a case of mesenteric Castleman's disease which was confirmed on pathology. A 60-year-old man was admitted to our hospital complaining of abdominal pain. On the physical examination, there was no palpable mass. Computed tomography findings and magnetic resonance imaging revealed a well circumscribed, lobulated round mass on the right side of the superior mesenteric vein. Laparoscopic surgery for the mesenteric tumor was carried out to obtain a definite diagnosis and treatment. In the operative field, the mass was located on the ascending colic mesentery and measured about 3 cm in size. It was solid and surrounded by a thin fibrous capsule. The histological diagnosis of the mesenteric tumor was hyaline vascular type Castleman's disease. The postoperative course of the patient was uneventful, and he was discharged on the 10th postoperative day.

キーワード：結腸間膜 (mesocolon), Castleman 病 (Castleman's disease), 腹腔鏡手術 (laparoscopic surgery)

緒 言

Castleman 病は、1956年に Castleman らにより、胸腺に類似した縦隔リンパ腫の過形成として報告された¹⁾のが最初で、腹腔内、特に腸間膜発生は比較的稀である。今回、我々は腹痛が原因で発見された腸間膜原発の Castleman 病を腹腔鏡下に摘出しえた一例を経験したので報告する。

症 例

患 者：60歳，男性

主 訴：腹痛

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：C型肝炎(20代)、痔核手術(30代)、糖尿病(59歳)

現病歴：近医にてC型肝炎、糖尿病を加療中、2008年1月末に腹痛を認め、腹部超音波にて腹腔内腫瘍を指摘され精査加療目的に当院内科紹介となり、摘出生検目的に外科紹介となる。

入院時現症：身長163.6cm、体重63.8kg、体温36.8℃、血圧149/78mmHg、脈拍75/分、眼球、眼瞼結膜に貧血、黄疸なく、胸部理学所見に異常は認められなかった。心窩部に圧

痛を認める他は腹部に異常は無く腫瘍は触知されなかった。入院時検査所見：可溶性IL-2-R713U/ml(術後7日目：780U/mlと変化なし)、IL-6 41.2pg/ml(術後7日目：4pg/mlと改善)と高値であった。他の血算、生化学、尿所見には異常は認められなかった。

胸部単純X線検査所見：縦隔及び肺野に異常を認めなかった。腹部CT所見：単純CTで上腸間膜静脈右側に長径4cm大の腫瘍をみとめ、造影CT早期相では境界明瞭、内部若干不均一で、後期相では均一な造影効果を認めた。腫瘍と腸管とは連続性が無かった(図1)。

腹部MRI：腫瘍はT1で腎臓と同等の低信号、T2で肝臓よりも高信号であった。

ガリウムシンチ：異常なuptakeは認めなかった。

胸部CT：胸腔内、縦隔に腫瘍像は認めなかった。

以上の所見より、腸間膜腫瘍は壁外発育性のGIST、Castleman病、悪性リンパ腫、もしくは内分泌系腫瘍などが考えられたが、確定診断は困難であった。確定診断および治療目的に手術を施行した。

手術所見：臍上部より腹腔鏡を挿入し左右側腹部にそれぞれ5mmのポート、左上腹部に12mmのポートを挿入した。腹腔内を観察すると、中結腸静脈が上腸間膜静脈に流入するやや末梢側の上腸間膜静脈右側に腫瘍を認めた。富血管性の腫瘍であり、主にlaparoscopic coagulating shearsで剥離し、栄養血管は露出して、太い血管はクリッピングにて

平成22年12月6日受理

*〒720-8520 広島県福山市沖野上町4丁目14-17

電話：084-922-0001 FAX：084-931-3969

E-mail：nishie_manabu@fukuyama-hosp.go.jp

処理して最後は右側腹部の5mmのポート部に4cmの切開を加え直視下にのこった流入血管を処理し腫瘍を摘出した。流入血管が多い為慎重に血管を処理する必要があり特に太い血管は二重にクリップした。手術時間は3時間で出血量は200mlであった(図2)。

摘出標本：比較的硬い腫瘍で大きさは3.3×2.7cmであり、被膜を有していた。剖面は黄白色、充実性であった(図3)。病理学的所見：腸間膜腫瘍は組織学的にはリンパ節と考えられ、皮質から髓質にかけてリンパ濾胞の増生がみられ、一部の濾胞では、血管の濾胞内浸潤が見られ、濾胞間には著明な形質細胞の増生が見られた(図4)。

以上の所見より腸間膜腫瘍は hyaline vascular type の

Castleman 病と診断した。

術後経過は順調で術後10日目に退院となった。

考 察

Castleman 病は1956年に Castleman ら¹⁾により最初に報告された、主に縦隔に発生する孤在性で手拳大のリンパ節の過形成性良性疾患である。胸腺に類似した縦隔リンパの過形成として、リンパ濾胞の過形成と血管内皮細胞の増殖を伴う著しい血管新生という特徴を有していた。その後1972年には Keller ら²⁾は形質細胞が濾胞間隙に多数見られるタイプを報告し、本症をリンパ濾胞の過形成と血管内皮細胞の増殖を特徴とする hyaline vascular type (HV 型)

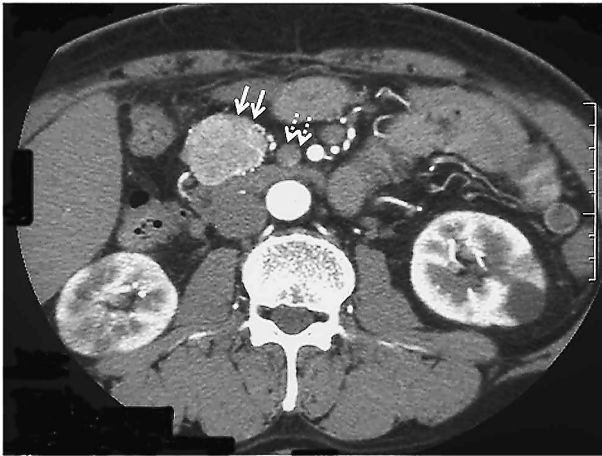


図1 造影CT早期相
上腸間膜静脈(点線矢印)右側に造影効果を有する長径4cm大の腫瘍(実線矢印)をみとめた。腫瘍と腸管とは連続性が無かった。

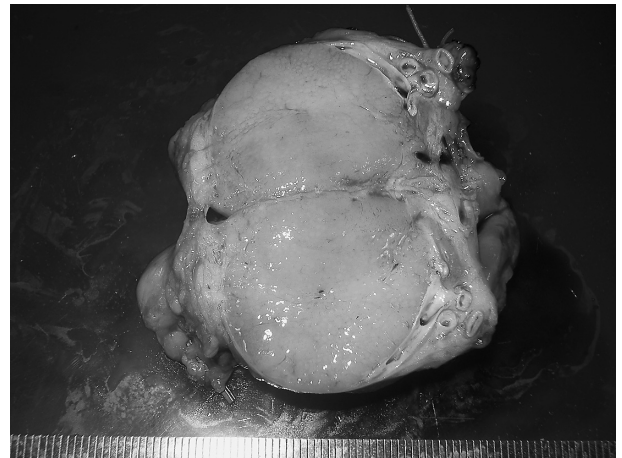


図3 摘出標本
比較的硬い3.3×2.7cmの腫瘍で薄い被膜を有していた。剖面は黄白色、充実性であった。

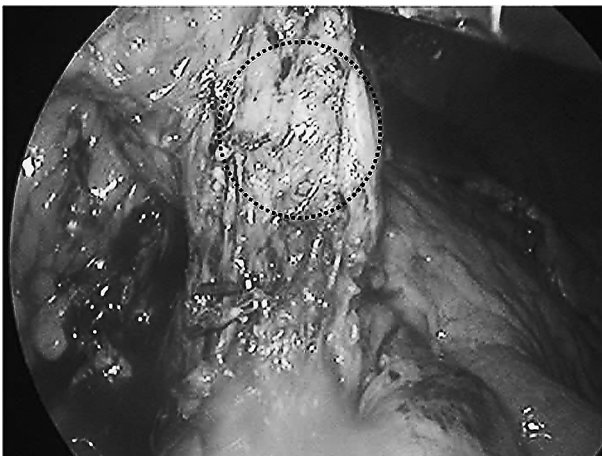


図2 術中写真
腫瘍(点線は腫瘍辺縁)を鉗子で引っ張り上げ流入血管を慎重に処理していった。

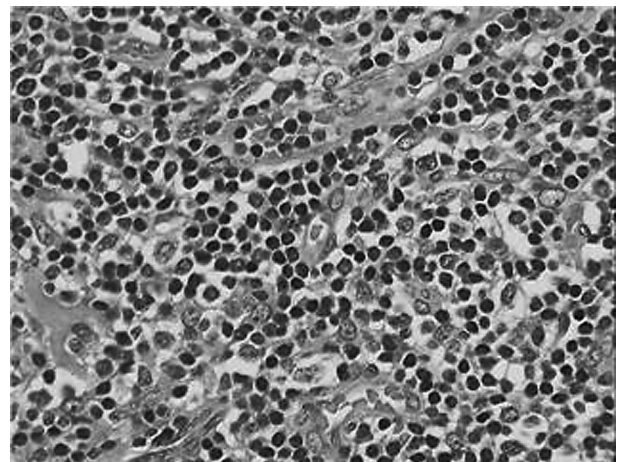


図4 病理組織写真(×200)
組織学的にはリンパ節と考えられ、皮質から髓質にかけてリンパ濾胞の増生がみられた。一部の濾胞では、血管の濾胞内浸潤が見られ、濾胞間には著明な形質細胞の増生が見られた。

と濾胞間隙の著明な形質細胞の増生を特徴とする plasma cell type (PC 型) の 2 つに分けた。現在では両者の中間的な組織像を示すタイプ mixed type を加え 3 つに分類される。一方、頸部、腋窩などの表在リンパ節を含む全身性のリンパ節腫大と、発熱、貧血、体重減少、肝脾腫などの全身症状を伴う症例が報告され、multicentric Castleman's disease (MCD) と呼ばれ、PC 型か mixed type が大半を占めている。

本邦では、1992年に浜田ら³⁾が Castleman 病 218 例の集計を行っており、発生部位は胸部 45.4%、頭頸部 24.8%、後腹膜 11% で、組織型は HV 型が 68.3%、PC 型は 13.3%、Mixed type は 7.3% と報告している。

本疾患の病因については過誤腫説¹⁾、炎症説²⁾、腫瘍説⁴⁾などが提唱されているが議論の分かれるところである。近年 PC 型の患者において高頻度に IL-6 高値がみられ、本症の示す多彩な症状の成因とも考えられた。実際本症例においても、腫瘍摘出後に IL-6 値は低下していた。さらに本症例で可溶性 IL-2-R が摘出前後に高値であったが、非特異的な上昇もきたす値であり、詳細は不明である。

臨床症状や検査所見としては HV 型では無症状のことが多く、偶然発見されることが多い。一方 PC 型は発熱、発汗、体重減少など多彩な臨床症状がみられ、血液検査上、貧血や血沈亢進、高 γ グロブリン血症、低アルブミン血症、白血球増多などを呈することが多い。

診断では、CT 検査では、HV 型は境界明瞭、内部均一で造影効果が強い。一方、PC 型では造影効果は乏しいとされる。また石灰化を有する例も散見される。MRI 検査では、T1 強調像で low、T2 強調像で high intensity で dynamic MRI での濃染が特徴とされる。また、HV 型では腹部血管造影検査で拡張した栄養動脈や腫瘍濃染像が見られることもある。

しかし、本疾患に特異的な症状や画像所見が無い場合、画像所見のみで確定診断は困難であり、術後の病理診断で確定診断されることがほとんどである。

治療に関しては本症は良性疾患であり、必ずしも手術適応とはならないが、悪性の有無を診断する意味も込めて切除されることが多い。また、病変が限局している場合、外科的切除により予後は良好である。しかし、MCD では確立された治療法が無く予後が不良であることが多いが、近年、抗 IL-6 レセプター抗体を用いた治療も試みられている⁵⁾。ただ、悪性リンパ腫を合併することもあるため注意深い経過観察が必要である⁶⁾。

腸間膜原発の Castleman 病に関しては米山ら⁷⁾が本邦報告例 22 例についての集計を報告している。その後、現在までに新たに 8 例の腸間膜原発の Castleman 病の報告⁸⁻¹⁵⁾が

あり、本例で 31 例目となる。

これらの報告を新たに集計したところ、平均年齢 41.3 歳、男性 11 例、女性 20 例で、症状は無症状から貧血、腹痛、腹部腫瘍、全身倦怠感、発熱などで、術前に疑診も含めて Castleman 病と診断された症例は本例を含め 4 例であった。発生部位は小腸間膜が 19 (61%) 例と最も多く、ついで横行結腸間膜 6 例 (19%)、S 状結腸間膜 4 例 (13%)、下行結腸間膜 1 例 (3%)、上行結腸間膜 1 例 (3%) の順であった。腫瘍の最大径は 13~170mm 大で、平均最大径は 57.5mm であった。組織型は、HV 型 17 例 (55%)、PC 型 9 例 (29%)、mixed type 3 例 (9%)、非定型 1 例 (3%) であり、1 例に関しては記載が無く、浜田らの報告に比べると PC 型がやや多い傾向であった。予後に関する記載がある報告は少ないものの、いずれも再発などの報告は無く、予後は良好と考えられた。本症例を含め 4 例^{10,15,16)}で腹腔鏡下に腫瘍を摘出しており、摘出生検となることが多いことも含めて侵襲が少ないメリットは大きいと考えられる。また腫瘍の広がりや播種性病変の有無などの検索においても小さい創で行える点においても腹腔鏡手術の意義は大きい。ただ本症例では出血時間、出血量において決してメリットだけを強調しうる点もあるが、本症例のごとく流入血管が多い場合、確実な止血操作を心がけることが必要である。

結 語

今回我々は上行結腸間膜に発生した Castleman 病の 1 例を経験した。腸間膜発生の腫瘍として本症は鑑別にあげべき疾患であり、腹腔鏡下摘出術の良い適応と考えられた。

文 献

- 1) Castleman B, Iverson L, Menendez VP : Localized mediastinal lymph node hyperplasia resembling thymoma. *Cancer* (1956) 9, 822-830.
- 2) Keller AR, Hochholzer L, Castleman B : Hyaline-vascular and plasma-cell types of giant lymph node hyperplasia of the mediastinum and other locations. *Cancer* (1972) 29, 670-683.
- 3) 浜田史洋, 西山宣孝, 藤原恒太郎 : 後縦隔発生 Castleman Lymphoma の 1 例 - 本邦報告 218 例の検討 - . *日臨外会誌* (1992) 53, 2100-2103.
- 4) Fisher ER, Sieracki JC, Goldenberg DM : Identity and nature of isolated lymphoid tumors (so called hyperplasia, hamartoma, and angiomatous hamartoma) as revealed by histologic, electron microscopic, and heterotransplantation studies. *Cancer* (1970) 25, 1286-1300.
- 5) 西山憲弘 : 抗 IL-6 受容体抗体による Castleman 病の治療. *医のあゆみ* (2007) 220, 713-718.
- 6) Larroche C, Cacoub P, Soulier J, Oksenhendler E, Clauvel JP,

- Piette JC, Raphael M : CD and lymphoma : report of eight cases in HIV-negative patients and literature review. *Am J Hematol* (2002) 69, 119-126.
- 7) 米山公康, 大山簾平 : 横行結腸間膜に発生した Castleman 病の 1 例. *日臨外会誌* (2005) 66, 2816-2821.
 - 8) 鈴木良典, 片岡正文, 田邊俊介, 大原利憲, 筒井信正, 能勢聡一郎 : 空腸腸間膜に発生した Castleman lymphoma の 1 例. *臨外* (2005) 60, 249-253.
 - 9) 片山敬久, 河野良寛, 森田弘江, 中川富夫, 園部 宏, 金澤 右 : S 状結腸間膜に発生した Castleman's disease の 1 例. *臨放* (2005) 50, 1071-1075.
 - 10) 野口忠昭, 堤 謙二, 宇田川晴司, 橋本雅司, 澤田寿仁, 渡邊五朗 : 腹腔内原発 Castleman 病の 2 例. *日臨外会誌* (2005) 66, 2390-2394.
 - 11) 辻 吉保, 迫田 順, 小野哲二郎, 古賀研志, 池田純啓, 本村聡, 今村賢一郎, 末藤大明, 大島孝一, 菊池昌弘, 内田政史, 早
渕尚文 : 粗大な石灰化を有した腸間膜原発 Castleman 病の 1 例. *画像診断* (2005) 25, 1516-1520.
 - 12) 宇野彰晋, 宗本義則, 三井 毅, 浅田康行, 飯田善郎, 三浦将司 : 腸間膜 Castleman 病の 1 例. *日臨外会誌* (2007) 68, 1312-1316.
 - 13) 花村 徹, 高田 学, 山口敏之, 小松信男, 橋本晋一, 小山正道, 丸山雄一郎 : 横行結腸間膜に発生した Castleman 病の 1 例. *日臨外会誌* (2007) 68, 697-701.
 - 14) 佐近雅宏, 関 仁誌, 宗像康博, 宮川雄輔, 保坂典子 : 回腸間膜に発生した Castleman 病の 1 例. *外科* (2007) 69, 1779-1784.
 - 15) 祝迫恵子, 有本 明, 加茂直子, 瀬尾 智, 浮草 実 : 横行結腸間膜に発生した Castleman 病の 1 例. *日臨外会誌* (2007) 68, 3100-3105.
 - 16) 岡本晋弥, 塚原雄器, 増山宏明 : 腫瘍内 IL-6 mRNA の発現が増加していた小児 Castleman's disease の 1 例. *小児外科* (2003) 35, 379-384.