

症例報告 腹腔鏡下に切除したS状結腸神経鞘腫の一例

昭和大学医学部外科学講座 (消化器・一般外科学部門)

大 中 徹 村上 雅彦 渡 辺 誠
 加藤 貴史 青木 武士 茂木健太郎
 古泉 友丈 三田村圭太郎 藤 森 聡
 榎並 延太

要約：神経鞘腫は Schwann 細胞に由来する腫瘍で、消化管、特に大腸に発生することは稀である。今回、S 状結腸に発生した神経鞘腫を経験したので報告する。症例は 73 歳、女性。検診で下部消化管内視鏡検査を受け、S 状結腸に辺縁なだらかな表面平滑な隆起性病変を指摘された。生検では正常粘膜のみ観察されたが、間葉系腫瘍も否定できないため、腹腔鏡下 S 状結腸切除術を施行した。術後経過良好で第 8 病日に退院した。病理組織学的には粘膜下層に繊維性被膜を有する腫瘍性病変を認め、S-100 で濃染し、 α -SMA 陰性、c-kit 陰性、Ki-67 低率陽性であることから神経鞘腫と診断された。

キーワード：神経鞘腫、消化管間葉系腫瘍、腹腔鏡、S 状結腸

間葉系腫瘍は頸部や四肢などの軟部組織に好発する腫瘍である。しかしながら、近年消化管原発の報告例が散見されている。中でも大腸原発の報告例は稀である¹⁻⁴⁾。今回われわれは腹腔鏡下に切除した S 状結腸神経鞘腫の 1 例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

73 歳、女性。

主訴：特になし。

既往歴：気管支喘息。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：近医にて定期検診の下部消化管内視鏡検査を受けたところ、肛門縁より 30 cm の S 状結腸に粘膜下腫瘍と考えられる隆起性病変を指摘され、精査加療目的に当院紹介受診となった。

初診時身体所見：身長 156 cm、体重 46 kg、体温 36.2℃、血圧 112/72 mmHg、脈拍 67 bpm、腹部は平坦、軟で、体表から腫瘍は触知しなかった。

入院時検査所見：血液生化学検査に異常はなく、腫瘍マーカーも CEA 3.0 ng/ml、CA19-9 5.0 U/ml といずれも正常範囲内であった。

下部消化管内視鏡検査：肛門縁より 30 cm 口側

の S 状結腸に約 30 mm 大の辺縁なだらかな粘膜下腫瘍様の隆起性病変を認めた。中央部に陥凹や潰瘍形成は認めず、cushion sign は陰性、bridging fold も陰性であった (Fig. 1)。内腔の狭小化はみられなかった。また、内視鏡生検では腫瘍の表層組織は正常粘膜組織であった。

腹部造影 CT 検査：S 状結腸に壁肥厚を認め、内

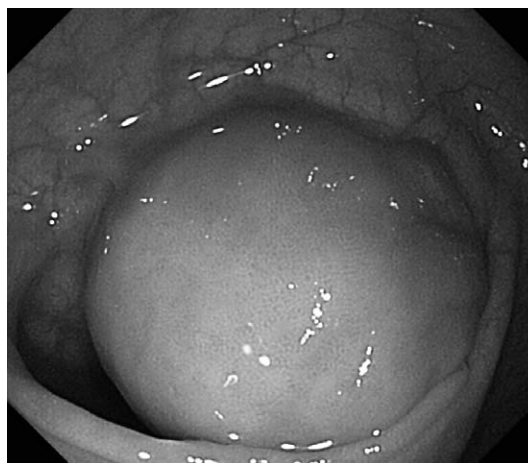


Fig. 1 Colonoscopy shows like a SMT (Smooth muscle tumor) at the sigmoid colon.

部が均一に造影された長径 35 mm 大の類円形の腫瘍を認めた。周囲のリンパ節腫大はみられなかった (Fig. 2)。

骨盤部 MRI 検査：S 状結腸の壁に一致して T1 強調画像で高信号、T2 強調画像で低信号な長径約 35 mm の腫瘍性病変が描出された (Fig. 3)。

以上の検査結果から S 状結腸粘膜下腫瘍と診断し、GIST 等の間葉系腫瘍を強く疑ったため、手術を施行した。

手術所見：臍部 12 mm ポートを中心とした 5 ポートによる腹腔鏡下手術を施行した。腹腔鏡診断では、腫瘍は腸間膜対側に発生し、壁外に突出するように存在、表面は平滑で漿膜と同様の被膜を有していた (Fig. 4)。腹腔鏡下 S 状結腸切除術、D2 郭清を施行した。吻合は臍部約 4 cm の小開腹創より、機能的端々吻合を行った。手術時間 120 分、出血少量であった。

経過：術後経過は良好で、合併症はなく、第 8 病日に退院となった。

切除標本肉眼所見：口側断端より 40 mm、肛門側断端より 20 mm の腸間膜対側に 35×40 mm の腫瘍を認め、腫瘍の約 4 分の 3 は漿膜側に突出していた (Fig. 5)。

病理組織検査所見：粘膜下層から漿膜下層にかけて繊維性被膜を有する腫瘍性病変を認め、内部は紡錘形の細胞が束状配列、柵状配列を呈しながら増殖していた (Fig. 6a)。細胞核に軽度の大小不同が見られるが、mitosis はなかった。また、破裂を示唆する所見もなかった。免疫組織学的検索では、S-100 が陽性 (Fig. 6b)、CD34 陽性、Vimentin 陽性、c-kit 陰性 (Fig. 6c)、 α -SMA 弱陽性、Ki-67 (陽性率 5% 未満 (低率)) であり、神経鞘腫と最終診断された。傍結腸リンパ節、中間リンパ節ともに好中球主体の炎症細胞浸潤のみで転移は認めなかった。

考 察

神経鞘腫 (Schwannoma) は Schwann 細胞由来の腫瘍であり、1910 年に Verocay⁵⁾ が報告して以来、数多くの報告がなされている。好発部位は脊髄、脳、躯幹、四肢などであり、消化管に発生する頻度は低く、なかでも大腸原発の神経鞘腫は稀である。Stout⁶⁾ は消化管に発生した神経鞘腫 42 例を集計し、胃に発生したものが 37 例と大部分を占め、大腸原発はわずか 2 例にすぎなかったと報告している。新田⁷⁾ の集計によると、1983 年から 2007 年に PubMed 上で 9 例の消化管および腸間膜発生の神経鞘腫の報告があり、まれな疾患であるため、術前の確定診断が困難



Fig. 2 Abdominal computed tomography scan shows wall thickness of the sigmoid colon. It looks like a circular type and not invasive to surrounding tissue.

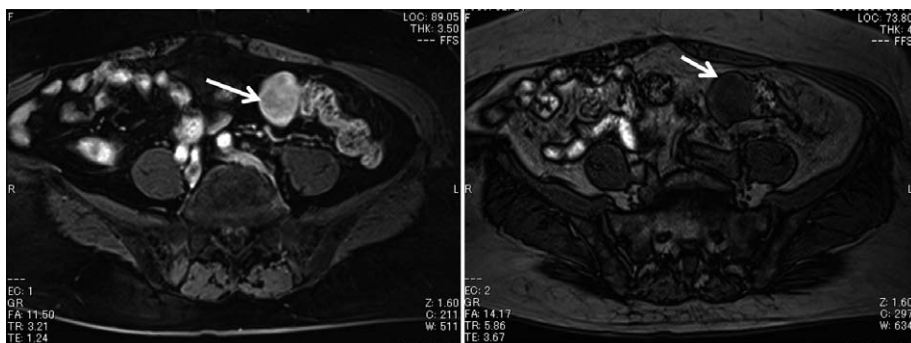


Fig. 3 Magnetic resonance imaging shows high intensity at T1-imaging and low intensity at T2-imaging.

であると報告している。

大腸原発の神経鞘腫は、われわれが調べたかぎりでは、1940年に児玉²⁾が第1例を報告して以来、自



Fig. 4 Laparoscope shows a lesion of elastic hard that protrudes from the serosa of the sigmoid colon. Adhesion with surrounding organs was observed.

験例を含めて58例の報告がある。藤本ら⁴⁾の1996年から2007年の集計によると、病変部位別には直腸が27例と最も多く、虫垂・盲腸が7例、上行結腸が5例、横行結腸が8例、下行結腸が6例で、S状結腸に発生した症例は自験例を含めて5例のみであった。

大腸原発の神経鞘腫は、多くが粘膜下腫瘍の形態を呈し、臨床症状は他の非上皮性腫瘍と同様に本腫瘍に特徴的な症状はみられない。一方、直腸原発例では排便困難、便秘、便柱狭小化などの便通異常を48%に認めるとの報告がある⁸⁾。本症例では検診で偶発的に発見されたものであり、便通異常などの臨床症状は認めなかった。

病理組織学的には、平滑筋腫、平滑筋肉腫、神経線維腫などとの鑑別がしばしば問題とされ、とくに筋原性腫瘍との鑑別はH-E染色では困難な場合があり、S-100やNSEを用いた免疫学的検討が重要である⁹⁾。自験例においても、免疫組織染色を施行

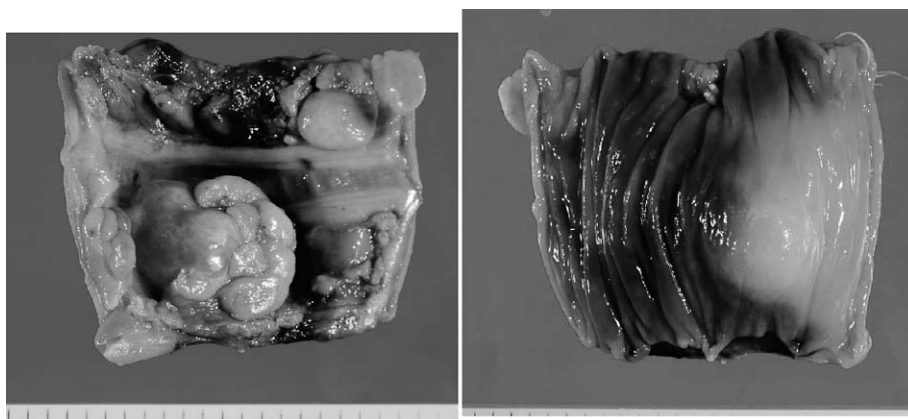


Fig. 5 Macroscopic findings of the resected specimens. The tumor was protruding serosal side but not exposed.

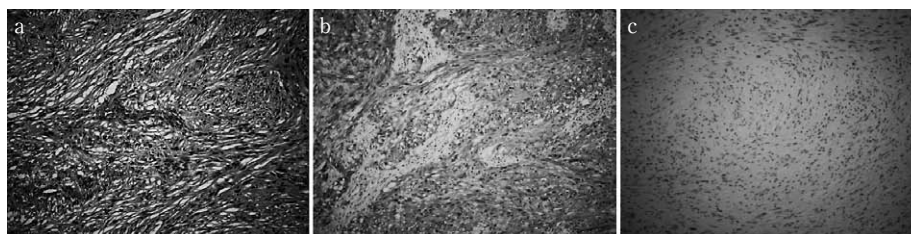


Fig. 6 (a) Histological findings of the resected specimen shows that the originated from the submucosal layer and its composed of spindle cells with palisading arrangement with low mitotic count (H.E.×100). (b, c) Immunohistochemical staining revealed that the tumor was positive for S-100 protein and negative for c-kit protein (S-100×100, c-kit×100).

し、S-100蛋白が強陽性で、筋原性腫瘍のマーカーであるSmooth muscle actinが陰性であったため、神経鞘腫と最終診断された。また、悪性神経鞘腫との鑑別は、明らかな遠隔転移を認める場合を除いて困難で、組織学的にも核分裂像の程度で良悪性を判断する以外に鑑別方法はない。自験例では遠隔転移を認めず、病理所見でも核分裂像(mitosis)はほとんどなく、リンパ節転移もなかったことから、悪性の所見はないと判断された。

消化管神経鞘腫の発生部位はAuerbach神経叢やMeissner神経叢であるが、Auerbach神経叢から発生するものが多いとされる¹⁰⁾。また、肉眼形態ではAuerbach神経叢から発生するものは半球状や広基性隆起の粘膜下腫瘍となる場合が多く、Meissner神経叢から発生するものは球状の有茎性ポリープ様形態を示す場合が多いとされている¹⁰⁾。

治療は外科的切除が第1選択であり、本症が一般的に良性疾患であることより、局所切除でよいとの報告が多い⁹⁾。一方、悪性例も少数ながら存在するため、リンパ節郭清を含めた系統的切除が必要との報告もある¹¹⁾。自験例では術中の所見で所属リンパ節の約10mm大の腫大を認めたため、悪性も考慮し、中間リンパ節までの郭清を行った。近年、進行大腸癌に対する腹腔鏡下手術の適応拡大に伴い、多くの施設で安全・確実に腹腔鏡下大腸切除術が行われている。当科でも大腸癌症例に対し積極的に腹腔鏡下手術を導入している^{12,13)}。特に本症例のような良性疾患に対しては、整容性と低侵襲性に優れた腹腔鏡下手術は良い適応であると考えられた。

きわめて稀なS状結腸に発生した神経鞘腫の1手術例を経験したので、若干の文献的考察を含めて報告した。

文 献

- 1) Miettinen M, Shekitka KM and Sobin LH: Schwannomas in the colon and rectum: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 20 cases. *Am J Surg Pathol* 25: 846-855, 2001.
- 2) 児玉喜夫: 直腸周囲を浸潤せるノイリノームの一例. 北越医会誌 54: 274-275, 1940.
- 3) 須田一史, 安達実樹, 梶山泰宏, ほか: 腹腔鏡補助下切除を行った横行結腸神経鞘腫の1例. 手術 51: 1567-1571, 1997.
- 4) 藤本佳也, 大矢雅俊, 黒柳洋弥, ほか: 横行結腸に発生した神経鞘腫の1例. 日本大腸肛門病会誌 60: 286-291, 2007.
- 5) Verocay J: Zur Kenntnis der Neurofibrome. *Beitrag Pathol Anat* 48: 1-69, 1910.
- 6) Stout AP: The peripheral manifestation of the specific nerve sheath tumor. *Am J Cancer* 24: 751-796, 1935.
- 7) 新田健雄, 海老原裕磨, 宮坂大介, ほか: 腹腔鏡下腫瘍摘出術を施行した腸間膜神経鞘腫の1例. 日消外会誌 43: 559-564, 2010.
- 8) 桐山正人, 小島靖彦, 近藤美樹子, ほか: 下行結腸神経鞘腫の1手術例. 日消誌 95: 1131-1135, 1998.
- 9) 鍋田光一, 足立孝雄, 筒井 完: 直腸神経鞘腫の1治療例. 日本大腸肛門病会誌 46: 86-89, 1993.
- 10) 星 進悦: 横行結腸神経鞘腫の1例. 日消誌 92: 1289-1292, 1995.
- 11) 石岡知憲, 西沢 護, 大倉康男: S状結腸に発生した神経鞘腫の1例. 胃と腸 26: 539-544, 1991.
- 12) 渡辺 誠, 村上雅彦, 加藤貴史: 腹腔鏡下結腸癌手術. 昭和医会誌 71: 21-24, 2011.
- 13) 加藤貴史, 村上雅彦, 青木武士, ほか: 単孔式腹腔鏡下手術 大腸癌手術. 昭和医学会雑誌 71: 43-48, 2011.

A CASE OF SIGMOID COLON SCHWANNOMA
—A Case Report—

Toru ONAKA, Masahiko MURAKAMI, Makoto WATANABE,
Takashi KATO, Takeshi AOKI, Kentaro MOTEGI,
Koji NOGAKI, Tomotake KOIZUMI, Keitaro MITAMURA
and Yuta ENAMI

Department of Surgery, Division of Gastroenterological and General Surgery, Showa University School of Medicine

Abstract — Although schwannomas are common in the neck, brain, and extremities, they are relatively rare in the gastrointestinal tract and particularly rare in the large intestine. We here present a rare case of schwannoma arising from the sigmoid colon. A 73-year-old woman presented to nearby clinic with abnormalities on colorectal cancer screening, and an elevated lesion, suggestive of a submucosal tumor, was observed in the sigmoid colon by colonoscopy. Although the endoscopic biopsy results showed normal mucosa, laparoscopy assisted partial resection of the sigmoid colon was performed in order to rule out gastro intestinal stromal tumor (GIST). Pathological examination of the resected specimen demonstrated spindle cells in a submucosal lesion. Immunohistochemical staining was strongly positive for S-100 protein, and negative for c-kit and smooth muscle actin; Ki-67 showed a low rate positive. Thus, the diagnosis of schwannoma in the sigmoid colon was confirmed.

Key words: schwannoma, sigmoid colon, laparoscopic surgery, stromal tumor

[特別掲載 (査読修正後受理)]