

症例報告

術前確定診断が得られなかったS状結腸神経鞘腫に対して腹腔鏡下に切除した1例

竹浪 努¹, 宮倉 安幸¹, 田巻佐和子¹, 福田臨太郎¹, 辻仲 眞康¹, 力山 敏樹¹¹ 自治医科大学附属さいたま医療センター 一般・消化器外科
〒330-8503 埼玉県さいたま市大宮区天沼町1-847

和文抄録

症例は64歳、女性。腹部膨満感を主訴に前医を受診し、精査目的で当院紹介となった。下部消化管内視鏡検査では、S状結腸に2cmの粘膜下腫瘍を認めた。腹部造影CT検査所見ではS状結腸壁内に内部均一な腫瘍を認めた。ボーリング生検と粘膜切開生検を施行したが確定診断に至らず、診断と治療目的に腹腔鏡下S状結腸切除術を施行した。病理所見では紡錘形細胞の柵状配列を認め、免疫染色でc-kit (-), CD34 (-), α -SMA (-), S100 (+), Ki-67陽性率数%であり良性の神経鞘腫と診断した。大腸粘膜下腫瘍は、術前の確定診断が難しいため診断と治療目的の腹腔鏡下切除術は良い適応であると考え。

(キーワード：神経鞘腫, S状結腸, 腹腔鏡手術)

緒言

神経鞘腫はSchwann細胞より発生する腫瘍で、脳脊髄等の中枢神経や四肢の末梢神経が好発部位であると知られている¹。消化管に発生する神経鞘腫の頻度は少なく、さらに大腸原発の神経鞘腫は非常に稀である²。今回われわれは術前診断が得られなかったS状結腸原発の神経鞘腫に対して腹腔鏡下に切除した症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

症例：64歳、女性。

主訴：腹部膨満感。

家族歴：特記すべき事なし。

既往歴：高血圧症、脂質異常症。

現病歴：2016年4月腹部膨満感が出現し、当院消化器内科を紹介受診した。

来院時現症：身長154cm、体重60.3kg。腹部は平坦、軟であり、腫瘍は触知しなかった。

来院時検査所見：血液生化学検査で異常所見を認めず、CEAとCA19-9は基準値内であった。

下部消化管内視鏡検査所見（当院初回）：肛門縁より30cmのS状結腸に半周性の表面平滑な隆起性病変を認めた（Fig. 1 a）。病変は弾性硬でクッションサイン陰性だった。潰瘍やdelleを認めなかった。超音波内視鏡検査では、第四層由来で内部に点状高エコーを伴う低エコー腫瘍であった（Fig. 1 b）。

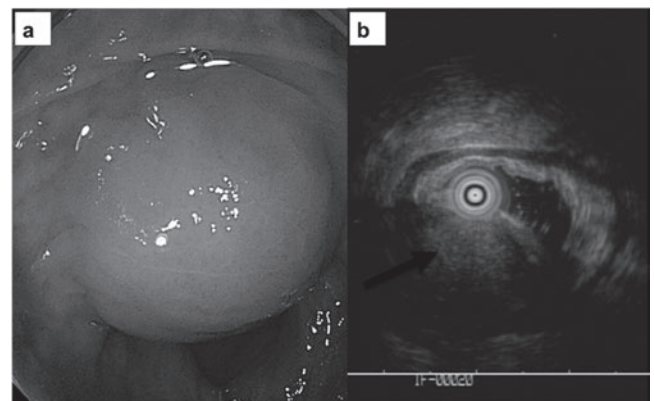


Fig. 1 下部消化管内視鏡検査所見

a：S状結腸に表面平滑な隆起性病変を認めた。

b：EUSでは第4層由来の低エコー腫瘍であった。

当院初回下部消化管内視鏡時ボーリング生検所見：腫瘍組織は含まれておらず、リンパ球浸潤を伴う正常粘膜を認めた。

腹部造影CT検査所見：S状結腸に辺縁に造影効果を伴い内部が均一な低濃度の20mm大の腫瘍を認めた。明らかなリンパ節転移や遠隔転移を認めなかった（Fig. 2 a, 2 b）。

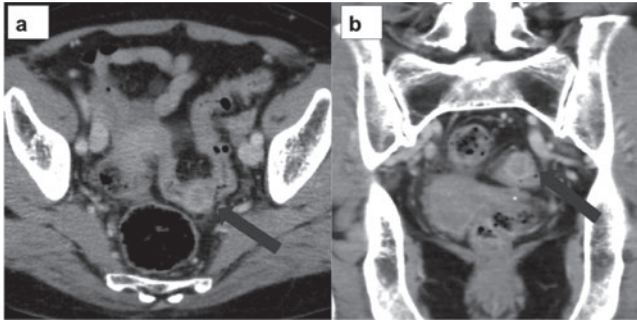


Fig. 2 造影 CT 検査

S状結腸に20mm大の造影効果を伴う腫瘤を認めた。

a: 水平断 b: 冠状断

以上の所見から、S状結腸原発の粘膜下腫瘍と診断し経過観察の方針となった。7ヶ月後にフォローアップ目的で施行した下部消化管内視鏡検査とCT検査では、粘膜下腫瘍に形態学的な変化を認めなかった。15ヶ月後、下部消化管内視鏡検査を再度施行し粘膜切開生検を行なったが、十分な検体が採取できず、Hematoxylin-Eosin染色ではリンパ球浸潤を伴う正常粘膜の診断であった。

経過観察中、CT検査と下部消化管内視鏡検査では腫瘍の増大は認めなかったが、病理診断が得られず悪性疾患が否定できなかったため、診断と治療を兼ねた切除を予定した。

手術所見：5ポートで腹腔鏡下S状結腸切除術を行った。明らかな肝転移、腹膜播種を認めなかった。血管処理は上直腸動脈を根部で処理するD2郭清を行った。再建はDouble stapling techniqueで行った。

切除標本肉眼所見：腫瘍の大きさは20×20×10 mm、黄色調を呈しており充実性で弾性硬であった (Fig. 3)。

病理組織学的所見：紡錘形細胞が柵状となり増生し、核分裂像は1/50HPFであった (Fig. 4)。

免疫組織学的所見：c-kit陰性、CD34陰性、S100陽性、 α SMA陰性、Ki-67陽性率数%であった。

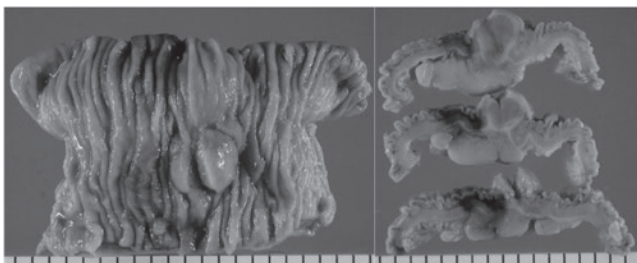


Fig. 3 肉眼標本所見

被包化された黄色調の充実性腫瘍を認めた。

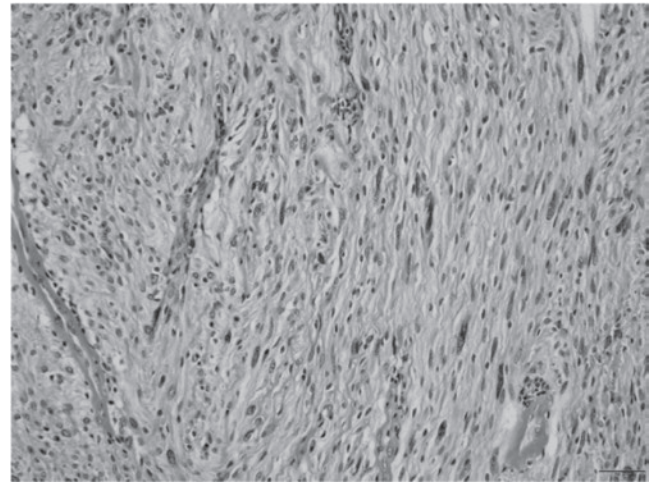


Fig. 4 病理組織学的検査所見

紡錘形細胞の柵状配列を認めた。(H.E.染色, 200倍)

よって本症例はS状結腸原発の神経鞘腫と診断された。術後経過：合併症なく経過し第7病日に退院となった。現在までに16か月無再発生存中で外来経過観察中である。

考察

神経鞘腫はSchwann細胞より発生する腫瘍で、脊髄や脳などの中枢神経や四肢が好発部位である。消化管の発生は稀であり^{1,2}、なかでも大腸原発の腫瘍は約5%と報告されている¹。2007年に神崎らが本邦の神経鞘腫70例を、2018年にBohlokらが95例の文献集計・報告をしているが^{3,4}、内視鏡や画像に特異的な所見はなく、他の粘膜下腫瘍との鑑別は困難な場合が多い。本症例も各種画像所見から神経鞘腫の診断は困難であった。鑑別診断として、Gastrointestinal stromal tumor (GIST)・消化管 Neuroendocrine tumor・悪性リンパ腫・平滑筋種・平滑筋肉腫が考えられるが、確定診断には病理組織学的検査が必要である。神崎らの報告では術前の生検で確定診断が得られた割合は11%、Bohlokらの報告では24%であり、粘膜下腫瘍の大腸壁内での局在の特徴から術前病理診断が困難な場合が多い。医学中央雑誌で「大腸」「神経鞘腫」をキーワードに1991年から2018年までを検索し(会議録を除く)、術前に病理組織学的検査を試みた症例を検討した (Table 1)^{3,5-24}。組織採取方法は22例中、生検19例、粘膜切開1例、超音波内視鏡下穿刺吸引生検術 (EUS-FNAB) 2例であった。術前の生検で神経鞘腫と確定診断が得られていたのは6例 (27%) で、生検の4例とEUS-FNABの2例であった。6例の病理所見は紡錘形細胞の柵状配列を認めており、そのうち5例は免疫染色が施行され、すべての症例でS100が陽性を呈していた。鑑別診断として考えられるGISTでも紡錘形細胞を呈するため、免疫組織染色を行うことは重要である。

Table 1 術前の病理所見が得られている大腸神経鞘腫の本邦報告（本症例を含む）

報告者	文献	年	年齢	性	部位	大きさ	潰瘍	生検結果	生検組織の免疫染色	術前診断
坂本	5)	1994	64	女	A	35mm	あり	Neurogenic tumor	S100(+), Desmin(-)	Neurogenic tumor
詫摩	6)	1995	67	女	R	50	あり	Colitis	なし	SMT
伊藤	7)	1996	72	女	T	45	あり	良性潰瘍組織	なし	SMT
中嶋	8)	1997	58	女	D	60	なし	壊死組織と炎症所見	なし	下行結腸癌
桐山	9)	1998	72	女	D	45	びらん	粘膜の過形成	なし	SMT
福地	10)	1997	69	男	T	40	あり	Group3	なし	SMT
笹富	11)	2000	68	女	S	47	あり	平滑筋種	なし	平滑筋種
北島	12)	2005	80	男	S	25	なし	粘膜切開したが 診断できず	なし	GIST
大塚	13)	2006	62	男	C	40	あり	炎症細胞	なし	SMT
深見	14)	2006	80	男	R	17	delle	紡錘形細胞	S100(+), Vimentin(-)	神経鞘腫
藤井	15)	2006	71	女	R	80	なし	紡錘形細胞	S100(+), Desmin(-)	神経鞘腫
藤本	16)	2007	53	女	T	30	あり	紡錘形細胞	なし	神経鞘腫
田中	17)	2008	71	女	S	28	delle	Group3	なし	記載なし
神崎	3)	2008	45	女	A	30	あり	紡錘形細胞	CD34(-), c-kit(-)	GIST以外の 間葉系腫瘍
細川	18)	2010	60	女	T	29	あり	神経鞘腫	なし	神経鞘腫
原田	19)	2013	41	女	T	20	delle	肉芽組織のみ	なし	SMT
水藤	20)	2014	44	男	A	18	なし	正常粘膜	なし	記載なし
鈴木	21)	2016	76	女	R	32	なし	正常粘膜	なし	カルチノイド
佐々木	22)	2016	62	男	A	35	なし	EUS-FNABで 紡錘形細胞	S100(+), Desmin(-)	神経鞘腫
田中	23)	2016	79	女	R	25	なし	EUS-FNABで 紡錘形細胞	S100(+), CD34(-), c-kit(-)	神経鞘腫
村上	24)	2017	71	女	R	30	なし	組織採取できず	なし	記載なし
本症例		2019	64	女	S	20	なし	組織採取できず	なし	SMT

C: cecum, A: ascending colon, T: transverse colon, D: descending colon, S: sigmoid colon, R: rectum, SMT: submucosal tumor, GIST: gastrointestinal stromal tumor

本症例では、当院初診時にボーリング生検、再検査時に粘膜切開生検を行なったが腫瘍組織が得られず病理診断に至らなかった。消化管粘膜下腫瘍の組織採取手法には、ボーリング生検、粘膜切開生検、EUS-FNABがある²⁵。ボーリング生検は最も簡便な方法であるが、その組織採取率は、潰瘍のない症例では5%、潰瘍を認める症例での潰瘍底からの生検でも40%と報告されている^{26,27}。本症例のような非潰瘍形成病変からの確定診断は難しいとされる。Kitaokaらは、胃の粘膜下腫瘍に対して粘膜切開生検を行い、生検組織と手術検体の病理所見（核分裂像・免疫染色所見・Ki-67陽性率）が91%一致していたことを示し、その診断能の高さと安全性を報告している²⁸。しかし、これまで大腸由来の粘膜下病変に対する粘膜切開生検の有用性は報告されていない。本症例でも粘膜切開生検を施行したが、診断には至らなかった。粘膜下腫瘍の大腸壁内での局在を正確に確認できず、ボーリング生検同様盲目的な採取のため有用性に限界があると考えられる。近年、組織採

取率と正診率の高さから消化管粘膜下腫瘍の術前病理診断にEUS-FNABは広く用いられており、GIST診療ガイドラインでも、腫瘍径2cm以上、5cm未満の粘膜下腫瘍が疑われた場合EUS-FNABが推奨されている²⁹。対象病変の大きさによって異なるが、EUS-FNABの術前の正診率は71~100%である³⁰。徳永らの消化管粘膜下腫瘍63例の検討によると、術前診断率84%、さらにEUS-FNABによる術前診断と手術切除標本の病理組織診断の一致率は96%と良好な結果を示している³¹。しかし、この63例中大腸病変にEUS-FNAが施行された症例は1例のみであった。医学中央雑誌で、「大腸 and EUS-FNA」または「直腸GIST and EUS-FNA」をキーワードに検索したところ、大腸の粘膜下腫瘍に対してEUS-FNAが施行された症例は9例であった（会議録を除く）。この9例のうち、直腸GISTの6例と上行結腸の神経鞘腫の1例がEUS-FNAによって確定診断が得られていた。堀江らは他臓器と接していた直腸粘膜下腫瘍に対してEUS-FNAを施行してGISTと診断した後、腫瘍縮小

目的に術前化学療法を行い、根治手術を行えた1例を報告しており、EUS-FNAによる確定診断の有用性を報告している³²。大腸原発の粘膜下腫瘍はその頻度が少なく確立した診断基準はないものの、直腸GISTの報告からもEUS-FNAによる術前病理診断が有用である可能性があり、今後症例を集積し検討する必要があると考える。

大腸原発の神経鞘腫の治療は基本的に手術である。現在のところリンパ節転移の報告はなく、術前に確定診断が得られていれば断端を十分にとった局所切除で十分とされている³。しかし確定診断が非常に困難なため、他の悪性疾患を念頭に置いた術式を選択する必要がある。本症例の場合でも、腫瘍径2cm以上、画像診断と術中所見でもリンパ節転移を認めなかったが、悪性疾患の可能性を否定できなかったため、腹腔鏡下切除術・D2郭清術を施行した。確定診断の困難な大腸粘膜下腫瘍に対して、低侵襲な、郭清を伴う腹腔鏡下切除術が適切な治療選択肢として考えられる。

結語

術前診断が得られなかったS状結腸原発の神経鞘腫に対して腹腔鏡下切除術を施行した1例を経験した。術前の確定診断ができない場合には、診断と治療を兼ねた腹腔鏡下切除術が治療選択肢としてなり得ると考えられた。

利益相反の開示

著者全員は本論文の研究内容について、報告すべき利益相反を有しません。

文献

- Shout A. The peripheral manifestation of specific nerve tumor. *Am J Cancer* 1935; **24**: 751-796.
- Das Gupta TK, Brasfield RD, Strong EW, et al. Benign solitary Schwannomas (neurilemmomas). *Cancer* 1969; **24**: 355-366.
- 神崎章之, 西鉄生, 伊藤昭宏 他. 腸重積をきたした上行結腸神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* 2009; **70**: 787-792.
- Bohlok A, El Khoury M, Bormans A, et al. Schwannoma of the colon and rectum: a systematic literature review. *World J Surg Oncol* 2018; **16**: 125.
- 坂本啓彰, 小柳泰久, 青木達哉 他. 上行結腸に発生した神経鞘腫の1例. *日臨外医会誌* 1994; **55**: 3115-3118.
- 詫摩哲郎, 森山剛栄. 大腸神経鞘腫の1例. *Prog of Dig Endosc 消内視鏡の進歩* 1995; **47**: 204-205.
- 伊藤生二, 松本整, 小暮洋暉 他. 横行結腸神経鞘腫の1例. *日本大腸肛門病学会雑誌* 1996; **49**: 139-143.
- 中嶋裕人, 今村幹雄, 山内英生. 下行結腸に発生した神経鞘腫の1手術例. *日本大腸肛門病学会雑誌* 1997; **50**: 125-129.
- 桐山正人, 小島靖彦, 近藤美樹子 他. 下行結腸神経鞘腫の1手術例. *日消誌* 1998; **95**: 1131-1135.
- 福地稔, 長町幸雄, 秋山典夫 他. 横行結腸悪性神経鞘腫の1例. *日本大腸肛門病学会雑誌* 1997; **50**: 41-44.
- Sasatomi T, Tsuji Y, Tanaka T, et al. *Kurume Med J* 2000; **47**: 165-168.
- 北島政幸, 瀧田尚仁, 山口浩彦 他. S状結腸神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* 2005; **66**: 1972-1975.
- 大塚敏広, 安藤道夫, 倉橋三穂 他. 盲腸神経鞘腫により腸重積を来した症例. *日消外会誌* 2006; **39**: 614-619.
- 深見保之, 寺崎正起, 坂口憲史 他. 術前診断した直腸神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* 2006; **67**: 834-837.
- 藤井眞, 田中康博, 齋藤哲也. 直腸原発悪性末梢神経鞘腫の1例. *日本大腸肛門病学会雑誌* 2006; **59**: 395-398.
- 藤本佳也, 大矢雅敏, 黒柳洋弥 他. 横行結腸に発生した神経鞘腫の1例. *日本大腸肛門病学会雑誌* 2007; **60**: 286-291.
- 田中征洋, 弥政晋輔, 澤崎直規 他. S状結腸神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* 2008; **69**: 3214-3218.
- 細川勇, 宅間邦雄, 松本潤 他. 腹腔鏡補助下に切除した横行結腸神経鞘腫の1例. *外科治療* 2010; **103**: 92-94.
- 原田岳, 倉地清隆, 中村光一 他. 有茎性隆起性形態を呈した横行結腸神経鞘腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 2013; **55**: 2011-2017.
- 水藤広, 山本悠司, 田中元 他. 経過観察中に形態が変化した上行結腸神経鞘腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 2014; **56**: 465-470.
- 鈴木雄飛, 平山一久, 金井俊和 他. 直腸神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* 2016; **77**: 1177-1182.
- 佐々木綾香, 阿部晶平, 木下雅登 他. EUS-FNAにて術前診断しえた上行結腸Schwannomaの1例. *Gastroenterol Endosc* 2016; **58**: 176-181.
- 田中秀治, 松橋延壽, 高橋孝夫 他. 直腸神経鞘腫に対して腹腔鏡下低位前方切除術を施行した1例. *日外科学系連会誌* 2016; **41**: 658-663.
- 村上英嗣, 赤木由人, 弓削浩太郎 他. FDG-PETで集積亢進を呈した直腸神経鞘腫の1例. *日本大腸肛門病学会雑誌* 2017; **70**: 233-237.
- 掛村忠義, 藤沼澄夫, 佐藤浩一郎 他. 【EUSによる粘膜下腫瘍の診断】大腸粘膜下腫瘍の画像診断とEUS-FNA. *消内視鏡* 2009; **21**: 1739-1748.
- 浅木茂. *消化管粘膜下腫瘍 (SMT) の内視鏡診断, 内視鏡治療手技の実際* 改訂版. 大阪, 医薬ジャーナル社, 1999.
- 吉永繁高, 後藤田卓志. 胃粘膜下腫瘍の診断と治療方針. *消内視鏡* 2016; **28**: 209-216.
- Kataoka M, Kawai T, Yagi K, et al. Mucosal cutting biopsy technique for histological diagnosis of suspected gastrointestinal stromal tumors of the stomach. *Dig Endosc* 2013; **25**: 274-280.
- 日本癌治療学会, 日本胃癌学会, GIST研究会. *GIST診療ガイドライン* 第2版補訂版. 東京, 金原出版, 2010.

- 30) Akahoshi K, Sumida Y, Matsui N, et al. Preoperative diagnosis of gastrointestinal stromal tumor by endoscopic ultrasound-guided fine needle aspiration. *World J Gastroenterol* 2007; **13**: 2077-2082.
- 31) 徳永周子, 木田光広, 山内浩史 他. 消化管粘膜下腫瘍手術症例における術前EUS-FNAの診断能についての検討. *Prog of Dig Endosc* 2012; **80**: 37-41.
- 32) 堀江義政, 斎藤彰一, 尾阪将人 他. EUS-FNABで診断した下部直腸GISTの1例. *胃と腸* 2018; 53: 1808-1813.

A CASE OF PREOPERATIVELY UNDIAGNOSED SCHWANNOMA OF THE SIGMOID COLON TREATED WITH LAPAROSCOPIC SURGERY

Tsutomu Takenami, Yasuyuki Miyakura, Sawako Tamaki, Rintaro Fukuda, Shingo Tsujinaka, Toshiki Rikiyama

Department of Surgery, Saitama Medical Center, Jichi Medical University
1-847 Amanuma-cho, Omiya-ku, Saitama 330-8503, Japan

Abstract

A 64-year-old woman visited a local physician with a chief complaint of abdominal distension, and was referred to our hospital for further examination. Colonoscopy showed a submucosal tumor in the sigmoid colon. CT showed a low density area with peripheral enhancement in the sigmoid colon. Histological findings of bore-biopsy and mucosal cutting biopsy specimens revealed no malignant cells. Therefore, laparoscopic sigmoidectomy was performed for both diagnosis and treatment. Pathological findings of the resected specimen demonstrated spindle cells with a fascicular arrangement. Immunohistochemistry was positive for S100 protein and negative for c-kit, CD34 and smooth muscle actin. The tumor was diagnosed as benign schwannoma. Although it is difficult to make a definitive preoperative diagnosis of submucosal tumors in the colon, laparoscopic surgery might be a therapeutic option due to the advantages of minimal invasiveness and curability. (Key words: laparoscopic surgery, schwannoma, sigmoid colon)