

A Case of Desmoid Tumor in the Mesostenuim Diagnosed after the Operation of the Esophageal Cancer

Hiroyuki TAKAHASHI, Koji MIKAMI, Yuichi IKEDA,
Toru MIYAKE, Yukiko HIRANO, Kimikazu HIRANO,
Daijiro HIGASHI, Kitaro FUTAMI, Takafumi MAEKAWA,
Atsuko OTA, Akinori IWASHITA

Department of surgery and pathology, Chikushi Hospital, Fukuoka University

Abstract

The patient was 58-years-old male who had esophagectomy and gastric replacement for the esophageal cancer in September, 2011. A large tumor in mesostenuim was unexpectedly found in abdominal CT after a year and a half the surgery and suspected the metastasis from the cancer because of the mild accumulation on the tumor in the PET-CT. The operation was performed and we found a white hard mass in the mesentery which diameter was about 7×7cm. The tumor was diagnosed with the desmoid tumor and had no evidence of any malignancies in the pathological examination. We reported this relatively rare case of the desmoid tumor after the operation of the esophageal cancer with some literature reviews.

Key words: Esophageal cancer, Desmoid tumor, mesostenium, PET-CT

食道癌術後経過観察中に発見された小腸間膜デスモイド腫瘍の1例

高橋 宏幸 ¹⁾	三上 公治 ¹⁾	池田 裕一 ¹⁾
三宅 徹 ¹⁾	平野由紀子 ¹⁾	平野 公一 ¹⁾
東 大二郎 ¹⁾	二見喜太郎 ¹⁾	前川 隆文 ¹⁾
太田 敦子 ²⁾	岩下 明憲 ²⁾	

¹⁾ 福岡大学筑紫病院外科

²⁾ 福岡大学筑紫病院病理部

要旨: 小腸間膜デスモイド腫瘍の1例を経験したので報告する。症例は58歳、男性、食道癌術後経過観察中に腹部CTで発見された。PET-CTで軽度の集積を示し、食道癌の転移再発の術前診断で開腹手術を行った。腫瘍は小腸間膜内に存在する7cm程の白色硬結で、空腸動静脈第1枝を巻き込んでいた。病理所見では悪性は無いのもの、紡錘形の細胞が柵状に配列しており、間質は部分的に膠原線維が増生する、小腸間膜由来のデスモイド腫瘍と診断された。現在術後1年で再発所見はないが、今後も慎重な経過観察が必要と思われた。

キーワード: 小腸間膜, デスモイド腫瘍, 食道癌, PET-CT

はじめに

デスモイド腫瘍は境界悪性に分類される線維性腫瘍の一種で、腹腔内に発生することは比較的稀と言われる。家族性大腸腺腫症や Gardner 症候群に伴って発症することが多く¹⁾、また開腹手術の既往もリスクになると言われる²⁾。今回我々は、食道癌術後の経過観察中に偶発的に見つかった小腸間膜デスモイド腫瘍の1症例を経験したので報告する。

症 例

患者：58歳，男性

家族歴・既往歴：特記事項なし

現病歴：2011年9月，胸部中部食道癌に対し，胸腔鏡補助下食道亜全摘術および胃管再建（後縦隔経路）を行った（T0，N1（#108），M0，f-stage I）。なお術前補助化学療法として5FU+CDDPを2コース行っている。以後外来通院中であったが，2013年3月21日のCTで小腸間膜内に最大径7cm大の腫瘤が認められ，4月15日手術目的で入院となった。

入院時身体所見：左季肋部～正中に手拳大の腫瘤を触知する。

入院時血液検査所見：CEA1.1ng/ml，SCC0.8ng/ml，その他血算・生化学に異常所見なし。

腹部CT所見（Fig. 1）：小腸間膜内に7cm大の辺縁明瞭で内部均一な造影効果のある孤発性の腫瘤を認める。

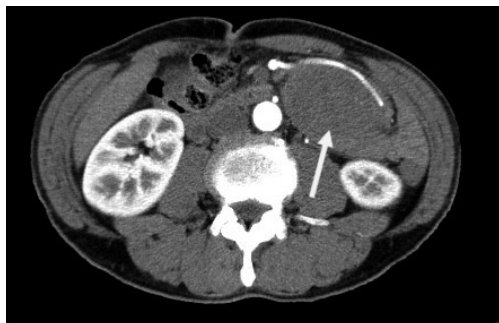


Fig. 1 腹部造影 CT 所見：
左上腹部に7×7cm大の腫瘤，内部均一な造影効果を伴う孤発性の腫瘤で境界は明瞭。腫瘤は小腸間膜内に存在し，下腸間膜静脈を圧排性に発育している。

PET-CT（Fig. 2）：腫瘤に早期相 SUVmax3.6，遅延相 SUVmax3.3と軽度の集積を認める。

手術所見：トライツ靭帯より約80cmの箇所の小腸間膜内に手拳大の白色硬結があり，空腸動静脈第1枝を巻き込んでいた。遠隔転移，周囲リンパ節腫脹は認めず。

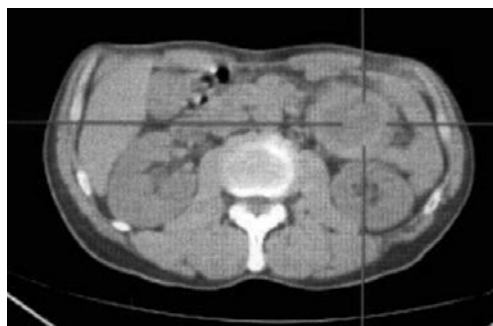


Fig. 2 腹部 PET-CT 所見：
腫瘤部に早期相 SUVmax3.6，遅延相 SUVmax3.3と軽度の集積を認める。

腫瘍周辺の腸間膜と，この範囲の小腸を約40cm部分切除し，再建した。

切除標本肉眼所見（Fig. 3）：7cm×7cm×4cmの白色結節の腫瘤で表面平滑，網状血管で被覆されていた。

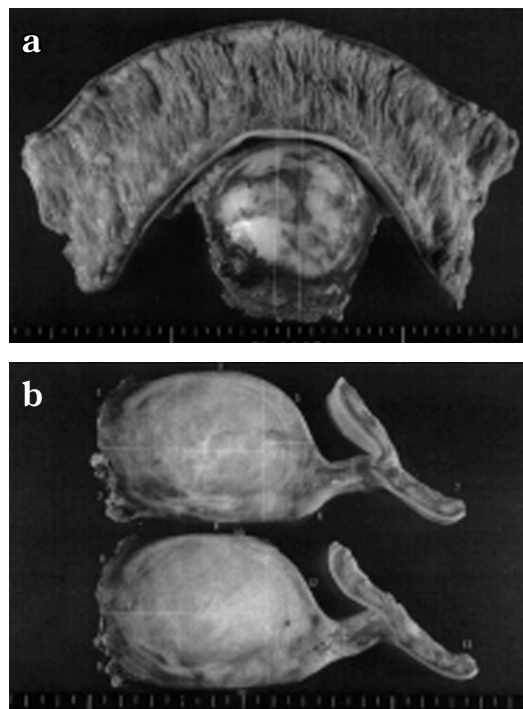


Fig. 3 切除標本肉眼的所見：
a) 70×70×40mm大の白色結節，空腸と近接しているが直接浸潤は認めない。
b) 断面は白色，膠原線維様で弾性軟であった。

病理組織学的所見（Fig. 4）：紡錘形細胞が柵状配列しており，間質は膠原線維が増生していた。免疫染色では vimentin や β -catenine が陽性で，c-kit も弱陽性であった。CD34 や S-100， α -SMA，desmin，bcl-2，cytokeratin AE1/AE3，EMA，estrogen receptor，progesteron receptor 等は陰性であった。悪性所見は認めなかった。

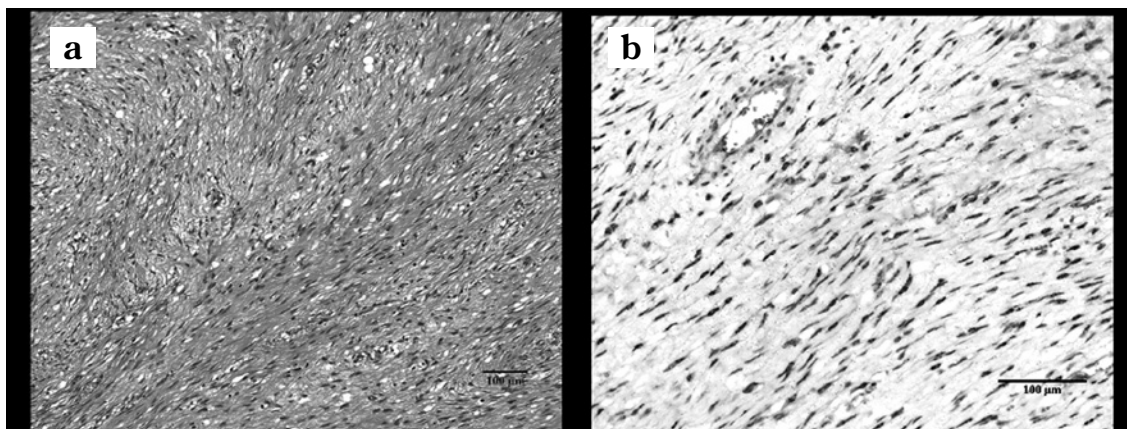


Fig. 4 病理組織学的所見：

- a) H.E. 染色×40 腫瘍は紡錘形の細胞が柵状に配列しており、間質は部分的に膠原線維が増生していた。ケロイド状の膠原線維も存在していたが、壊死組織は認めなかった。
- b) 免疫染色×40 腫瘍細胞は核を中心にβ-catenine にび漫性に陽性（赤色）を示した（Alkaline Phosphatase 標識，Fast Red 発色による）。

術後経過：術後経過に問題なく、9日目に自宅退院となった。現在術後1年2か月が経過しているが、再発は認めていない。

考 察

デスマイド腫瘍は全新生物の0.03%を占めるに過ぎない稀な疾患で、Reitamoら³⁾の報告によるとその発生頻度は100万人に2.4-4.3人程度であるという。デスマイド腫瘍は発生部位により、腹壁デスマイド腫瘍(49%)、腹壁外デスマイド腫瘍(43%)、腹腔内デスマイド腫瘍(8%)の3型に分類され、さらに腹腔内デスマイド腫瘍は腸間膜デスマイド腫瘍と骨盤腔デスマイド腫瘍に分類される。これまで本邦での腸間膜デスマイド腫瘍の報告例は131例ほど存在し、2003年以降の39例に限れば、小腸間膜デスマイド腫瘍が31例(79.5%)、結腸間膜デスマイド腫瘍が4例(10.3%)、小腸間膜+結腸間膜デスマイド腫瘍が3例(7.7%)、虫垂間膜デスマイド腫瘍が1例(2.6%)となっている⁴⁾。病理組織学的にはStoutら⁵⁾により、①分化した線維芽細胞の増殖、②細胞間に膠原線維が存在、③浸潤性発育を呈するが細胞異型性や核分裂像などの悪性所見に乏しい、④遠隔転移はないが局所再発しうる、と定義されている。発症原因は明らかではないが、家族性大腸ポリポーシスやGardner症候群に合併して発症することが多く¹⁾、また開腹手術の既往や女性ホルモンの影響などが関与している²⁾とされている。画像検査に特異的所見はないと言われる。CTではほぼ均一な充実性腫瘍として認められることが多く、造影の程度も様々である。MRIではT2強調画像で高信号もしくは不均一な信号を呈し、高信号部分は細胞成分が密で低信号部分は膠原線維が豊富な部分に相当

すると言われている⁶⁾。上述のように、本疾患は稀かつ特徴的な画像所見に乏しく自覚症状を欠くことが多いため、術前診断が非常に困難である。治療の第一選択は外科的切除であるが、Enzingerら⁷⁾は腹部デスマイド腫瘍は15～30%、腹部以外のデスマイド腫瘍は35～60%に術後再発をきたすと報告しており、完全切除後も慎重な経過観察が必要である。また局所再発例や切除不能例には非ステロイド性抗炎症剤、メシル酸イマチニブ、抗エストロゲン剤などの薬物療法^{8) 9) 10)}や放射線療法の治療報告例があるが、確立されたものはない。

自験例は無症状で、食道癌術後1年半で偶発的に発見された病変である。fStageはIであったがPET-CTは軽度集積を示し、術後数か月で発生・増大するという経過をとっており、臨床的に食道癌の転移再発を否定できなかった。患者は中年男性でFAPやGardner症候群の既往もなく、また病理組織診断のestrogen/progesterone receptorも陰性であった。食道癌手術は胃管による再建のため開腹を行っていたが、小腸間膜には操作が及んでいない。しかし本症例に関しては手術による機械的刺激が誘因となって発症した可能性が最も高いと考える。

食道癌術後に発生したデスマイド腫瘍の症例は、医学中央雑誌で検索した限りでは、2004年の大川らによる報告例¹¹⁾のみであった。自験例も58歳男性、食道癌術後1年半での発症、小腸間膜デスマイドであったなど共通点は多い。しかし悪性腫瘍(食道癌)とデスマイド腫瘍の発生との因果関係は不明である。臨床的に問題なのは、このようなケースで病変が見つかった際にそれが悪性腫瘍の転移再発かどうかの判断が困難である点である。自験例は食道癌の転移再発を否定できないが、孤発性腫瘍で根治切除が可能と判断したため、手術による腫瘍摘出を行った。その結果、偶然デスマイド腫瘍と診断

された。

自験例は術後1年2か月の段階ではデスマイド腫瘍の再発は認めていないが、今後も画像検査を中心とした定期的なフォローアップが必要と考えられた。

結 語

食道癌術後に偶発的に発見され、手術により根治し得た小腸間膜デスマイド腫瘍の1例を報告した。

引 用 文 献

- 1) Hayry P, Reitamo JJ, Totterman S, et al: The desmoid tumor. Analysis of factors possibly contributing to the etiology and growth behavior. *Am J Clin Pathol* 1982; 77: 674-680.
- 2) Lim CL, Walker MJ, Mehta RR, et al: Estrogen and antiestrogen binding sites in desmoid tumors. *Eur J Cancer Clin Oncol* 1986; 22: 583-587.
- 3) Reitamo JJ, Hayry P, Nykyri E, et al: The desmoid tumor (1): Incidence, sex, age and anatomical distribution in the Finnish population. *Am J Clin Pathol* 1982; 77: 665-673.
- 4) 三輪知弘, 堀明 洋, 森岡 淳 他: 横行結腸間膜デスマイド腫瘍の1例. *日臨外会誌* 2012; 73: 1002-1007.
- 5) Stout AP: Juvenile fibromatoses. *Cancer* 1954; 7: 953-978.
- 6) 谷口尚範, 岩間祐基, 杉森智亜紀 他: 腸間膜デスマイド腫瘍の画像診断. *臨放* 2002; 47: 1836-1842.
- 7) Enzinger FM, Weiss SW: Fibromatoses. *Soft tissue tumors. Third edition. CV Mosby, St. Louis, 1995, p201-229.*
- 8) 河島秀明, 石後岡正弘, 原 隆志 他: Tamoxifen と sulindac が奏効した骨盤壁デスマイド腫瘍の1例. *日臨外会誌* 2004; 65: 1715-1718.
- 9) 藤江裕二郎, 山本浩文, 池田正孝 他: 切除後再発を繰り返す腹腔内デスマイド腫瘍に対してメシル酸イマチニブを使用した1例. *手術* 2004; 58: 1789-1792.
- 10) 寺山裕嗣, 山本康弘, 松田年 他: ホルモン療法により延命効果を認めた腸間膜デスマイド腫瘍の1例. *日臨外会誌* 2000; 61: 3060-3065.
- 11) 大川卓也, 仁瓶喜朗, 山下俊樹 他: 小腸間膜デスマイド腫瘍の1例. *日消外会誌* 2004; 37: 73-77.
(平成 26. 10. 10 受付, 平成 26. 11. 13 受理)