

## A Case of Obstructive Ileus Occurring Early after Surgery in a Patient Undergoing a Resection for a Mesenteric Desmoid Tumor

Yoshiaki SUMIYOSHI<sup>1)</sup>, Norio IWAO<sup>1)</sup>, Koji MAKIMOTO<sup>2)</sup>,  
Norimi SAKAI<sup>2)</sup>, Yuichi YAMASHITA<sup>2)</sup>, Takafumi MAEKAWA<sup>2)</sup>  
and Takayuki SHIRAKUSA<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup> *Department of Surgery, Seihokai Marin Hospital*

<sup>2)</sup> *Second department of Surgery, School of Medicine, Fukuoka University*

**Abstract:** In the general population desmoid tumors are rare. Desmoids originate from musculo-aponeurotic tissue and, from a histological point of view, are benign tumors because they consist of mature uniform fibroblasts with normal rates of mitosis. They are also unable to metastasize. However, they can become quite large, and often infiltrate and compress the surrounding viscera and also have a marked propensity for recurrence after a conservative resection. This report describes a case in which mesenteric desmoid causing obstructive ileus developed after surgery in a 58-year-old man who had been undergone a low anterior resection for rectal carcinoma (P0, H0, n1, ss: stage III) about 15 months earlier. Obstructive ileus occurred only 8 days after surgery for the desmoid tumor. The obstructive ileus was caused by a rapid recurrent desmoid tumor which adhered to the intestinal wall. Because of this trend, an aggressive wide local excision has now become the preferred treatment. However, a complete and wide resection cannot always be performed because mesenteric desmoids often occur near the vessels, nerve, ureter, and other important organs. Radiation therapy and a repair the mesenteric wall using the synthetic membrane after surgery is therefore useful in preventing such our complications.

**Key words:** intra-abdominal desmoid tumor, mesenteric desmoid tumor, obstructive ileus, complication after surgery

### 腸間膜デスモイド腫瘍手術後早期に腸閉塞症状が出現した一例

住吉 慶明<sup>1)</sup> 岩尾 憲夫<sup>1)</sup> 蒔本 好史<sup>2)</sup>  
酒井 憲見<sup>2)</sup> 山下 裕一<sup>2)</sup> 前川 隆文<sup>2)</sup>  
白日 高歩<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup> 聖峰会マリン病院外科

<sup>2)</sup> 福岡大学医学部第2外科学教室

**要約：**デスマイオイド腫瘍は元来まれな腫瘍で、その発生部位や臨床経過の違いにより腹壁デスマイオイド、腹壁外デスマイオイド、および腹腔内デスマイオイドにわけられている。腹腔内デスマイオイドはデスマイオイド腫瘍の約10%をしめており、さらに腸間膜デスマイオイドと骨盤腔内デスマイオイドに細分化されている。デスマイオイドは局所の浸潤性増殖をしめすが、転移はなく、その組織像にも悪性を思わせる所見は認められない。しかしながら、とくに腸間膜デスマイオイドの場合神経や血管および重要臓器のそばまで浸潤増殖していることが多く認められ、完全切除が困難な場合にしばしば遭遇する。今回我々が経験した一例は58歳の男性の腸間膜デスマイオイドの症例である。約15か月前に直腸癌（P0, H0, n1, ss: stage III）に対して低位前方切除術が施行されており、デスマイオイド腫瘍切除後のわずか8日目に腸閉塞が出現した症例である。腸閉塞の原因は、デスマイオイド腫瘍切除後の残存組織が、急激に増殖して小腸壁に浸潤付着し小腸が捻転を起こした為に、発生したものであった。先に述べた様に腸間膜デスマイオイドの完全切除はしばしば困難なことが多く、残存組織が局所に残ることが多く、今回の我々の症例の様な合併症や局所再発を防ぐためにも、完全切除に努めることが重要である。切除後の粘膜の修復を完全に行うことや、切除段端を人工膜で被包すること、デスマイオイド切除後に局所放射線照射を加えることも有用であると考えられた。

**索引用語：**腹腔内デスマイオイド腫瘍、腸間膜デスマイオイド腫瘍、腸閉塞、術後合併症

## はじめに

腹腔内に生ずるデスマイオイドはデスマイオイド腫瘍の約10%をしめており<sup>1)</sup>、発生部位によって、腸間膜デスマイオイドと骨盤腔デスマイオイドの2つに分けられる。組織像に差異はないが、臨床像を異にする<sup>2)-5)</sup>。今回我々は、S状結腸癌術後に発生した腸間膜デスマイオイドを摘出した術後8日目の早期に腸閉塞症状をきたした症例を経験したので、その経過および原因について考察し報告する。

## 症 例

患者：58歳、男性

主訴：腹部腫瘤触知

家族歴：特記事項なし

既往歴：平成11年4月23日直腸癌（P0, H0, n1, ss: stage III）にたいして直腸低位前方切除術+リンパ節郭清術（D2）施行

入院時検査所見：貧血（-）、肝機能異常（-）、腎機能異常（-）、尿潜血（+++）。PST-1が16ng/mlと軽度上昇している以外 CEA, IAP, TRA, TPAなどの腫瘍マーカーには異常なかった。

腹部CT検査所見：後腹膜に接して左腸腰筋の直上に約5×6cmの表面平滑で内部均一な腫瘍を認めた（図1）。左腎は軽度腎盂の拡張が認められた（図2）。

経過：平成12年腹部腫瘤を触知し来院。癌の局所再発と考え平成12年9月8日開腹手術をおこなった。手術後

の経過は良好であったが、術後8日目に腸閉塞症状出現（図3）したため、9月16日再開腹し、イレウス解除術をおこなった。その後の腸閉塞症状の再発はなく経過良好で退院された。平成15年現在も腫瘤の再発は認められていない。

手術所見：（初回手術所見 平成12年9月8日）

全身麻酔下腹部正中切開にて開腹した。腹水や腹膜転移および肝転移はなく腫瘍は約6cmの大きさで、後腹膜より発生しており、左内腸骨動脈・外腸骨動脈分岐部の直上に位置し、左尿管と小腸腸間膜と強く癒着していた。腫大したリンパ節は肉眼的には、大動脈および腸間膜にも認められなかった。まず腫瘍を後腹膜より電気メスにて剥離した。左尿管は鈍的に剥離可能であったが、腸間膜との剥離は困難で、小腸腸間膜の一部を合併切除した。腸間膜内の栄養血管を結紮処理したことにより、虚血に陥った小腸を約10cm切除し、端・端吻合にて再建した。十分に止血を確認した後手術を終了した。

（再手術所見 平成12年9月16日）

全身麻酔下に腹部正中切開を行い再開腹した。当初、小腸吻合部の狭窄によって生じた腸閉塞と考えられていたが、吻合部には狭窄はなく吻合部を含めて口側および肛門側の小腸も拡張していた。吻合部よりさらに60cm肛門側の小腸が後腹膜に癒着し、小腸にねじれが生じた為に発生した腸閉塞であった。後腹膜の肉芽組織と癒着していた小腸を剥離したのち可及的に肉芽を除去し腹膜を修復した。小腸には血行障害が認められなかった為、腸切除は行われなかった。

（病理所見-1）



図1 骨盤部 CT 所見

後腹膜に接して約 6cm の平滑で均一な内部構造をしめす腫瘍が認められる。



図2 腹部 CT 所見

左の腎盂の拡張が認められる。

肉眼所見：後腹膜原発の表面平滑な腫瘍でおおきさは 5.5×6.0cm であった。剖面では被膜はなく乳白色でほぼ均一な充実性組織で構成されており出血や変性および色素沈着などの所見は認められなかった。

組織所見図（図4）：比較的均一な形態をしめす紡錘形細胞と豊富な膠原線維で構成され、紡錘形細胞はよく分化した線維芽細胞に類似し、極少数の核分裂像は認め

られるが、核の大小不同や異型性は認められない。粘液変性した部位が散在している。

免疫組織染色（図5）：増殖細胞は vimentin や alpha-smooth muscle actin によって染色されるが、CD34 や S100 蛋白には染色されなかった。

（病理所見-2）

再手術の際に小腸と癒着していた後腹膜の肉芽組織の



図3 腹部単純レントゲン撮影（臥位）  
デスモイド腫瘍摘出術後8日目の所見。拡張した小腸が認められる。

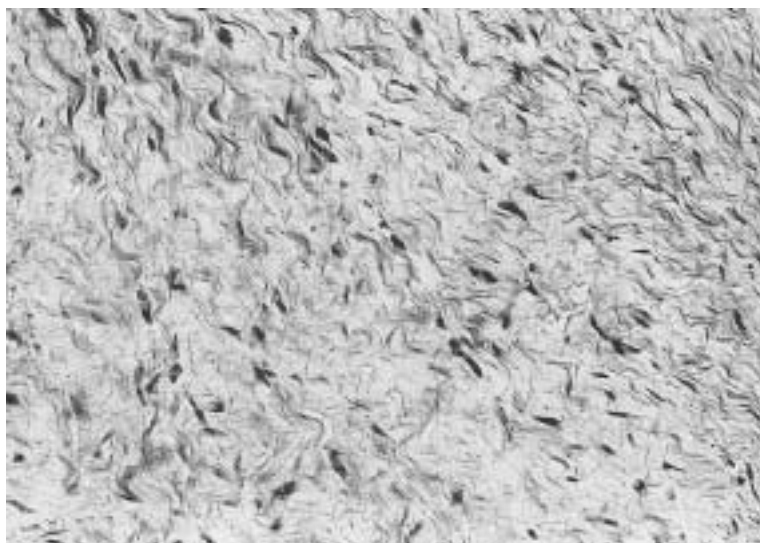


図4 組織所見（HE染色，×80）  
豊富な膠原線維と紡錘形細胞とが増殖している。紡錘形細胞は比較的均一な形態で核異型や核分裂像は認められない。

組織検査をおこなった。

前回切除した後腹膜腫瘍と同様に、よく分化した線維芽細胞と豊富な膠原線維の増生が認められた。増殖している線維芽細胞には異型性は認められなく、核分裂像や核の大小不同はなかった。免疫組織学的所見も初回手術時に摘出した腫瘍と同様な所見であった。

## 考 察

デスモイド型線維腫症は百万人に2～4名の割合で発生するまれな腫瘍である<sup>1)6)7)</sup>。分化した線維芽細胞の浸潤性増殖を示し、局所再発を繰り返すが、転移するこ

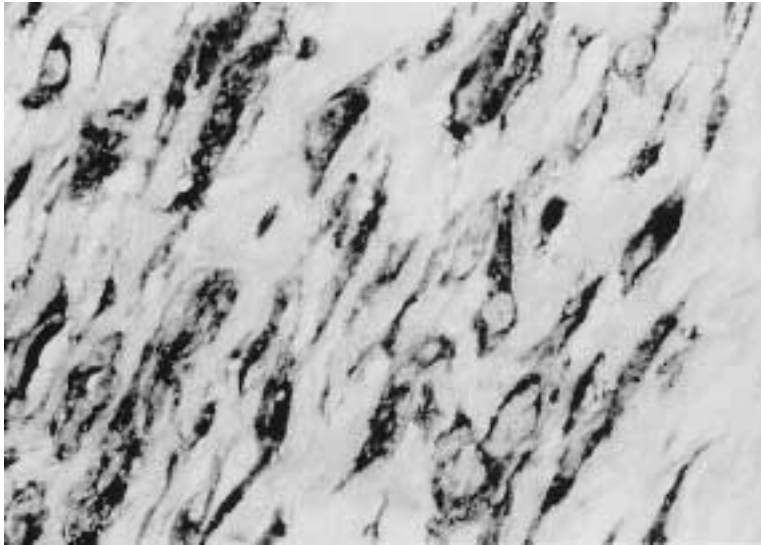


図5 免疫組織染色所見 (vimentin,  $\times 160$ )

vimentin 抗体による免疫組織染色。紡錘形細胞の細胞質に強く染色される。

とはない。臨床病理学的には腹壁デスマイド、腹壁外デスマイド、および腹腔内デスマイドの3型にわけられ、さらに腹腔内デスマイドは部位によって腸間膜デスマイドと骨盤腔内デスマイドの2つに分けられる<sup>8)</sup>。骨盤腔内デスマイドは腹壁デスマイドの亜型とも考えられ、主として20～35歳の女性の腸骨窩や骨盤腔下部に生じ、膀胱、膣、直腸、腸骨動静脈などの周囲に浸潤し、圧迫症状をきたす<sup>1)-4)</sup>。一方腸間膜デスマイドは腸間膜および後腹膜に生じ大網や胃結腸靭帯にも浸潤する。腸管を圧迫してイレウスや穿孔を生じ、尿管の圧迫による水腎症、さらには腎不全をきたす。発症年齢は、1歳未満から60歳代までと幅広く、女性にやや多い、誘因として腹部手術が重視されている<sup>1)5)9)-11)</sup>。高頻度に Gardner 症候群に合併し、大腸ポリープや癌に対する切除術後に腹腔内デスマイドを生ずる<sup>11)12)</sup>。本症例は58歳の男性で直腸癌の開腹手術後1年5か月後に左内外腸骨動脈分岐部直上の後腹膜より発生した腫瘍で、組織学的所見および免疫組織学的所見より腸間膜デスマイドと診断され、左尿管を圧迫して左の水腎症を引き起こしていた。腫瘍(デスマイド)発生の機序は解明されていないが、Gardner 症候群に伴うデスマイドの APC gene には、germ line mutation に加えて somatic mutation が見だされている。APC gene は、5q21-22 に locus をもち、この遺伝子の変異がデスマイドの発症に関与していることが推定されている<sup>13)</sup>。画像診断的には CT

像は辺縁がはっきりしている場合もあるが、不整から不明瞭まで様々である。陰影は均一で CT 値は 45-60HU で、造影剤で増強されないと報告されている<sup>12)14)15)</sup>。また MRI での検討によれば、85%の症例は T2 強調像で筋肉に比して高信号強度をもっており、また不均一に抽出される腫瘍中の低信号強度の部分は豊富なコラーゲン繊維を反映していたと報告されている<sup>16)</sup>。67Ga-citrate シンチグラフィでデスマイドの検出が可能であったとの報告もあり、病巣範囲の決定や切除後の再発・転移巣の早期検出などに有用だと考えられる<sup>17)</sup>。治療に関しては、放射線療法、化学療法、およびホルモン療法などがあるが<sup>18)-20)</sup>、外科的切除が最も効果的な治療法である<sup>12)21)22)</sup>。しかし、局所再発の頻度は高く、とくに完全摘出出来ない場合は高頻度に再発する<sup>23)</sup>。本例においても腸骨動脈の直上の後腹膜より発生していた為、初回手術においてはやや組織を残存させた為、急激に増殖した腫瘍と小腸が癒着した為に腸管の捻転がおこり腸閉塞症状が出現したものと考えられた。デスマイド腫瘍である可能性を念頭に置き、可能な限り腫瘍の完全摘出と摘出後の修復すなわちメッシュや癒着防止材などによる腹膜欠損部の修復が本症例の様な合併症を防ぐために必要である。また腫瘍の切除が十分でない場合には放射線療法<sup>18)</sup>の追加が腫瘍再発の防止に有用である。

## 謝 辞

病理所見のご指導ならびに免疫染色写真の御供与をしていただきました病理学教授岩崎 宏先生に感謝いたします。

## 文 献

- 1) Reitamo, J. J. et al.: The desmoid tumor. 1. Incidence, sex-, age-, and anatomical distribution in the Finnish population. *Am. J. Clin. Pathol.*, 77 : 665-673, 1982.
- 2) Allen, P. W.: The fibromatoses; a clinicopathologic classification based on 140 cases. Part 1. *Am. J. Surg. Pathol.*, 1 : 255-270, 1977.
- 3) Allen, P. W.: The fibromatoses; a clinicopathologic classification based on 140 cases. Part 2. *Am. J. Surg. Pathol.*, 1 : 305-321, 1977.
- 4) 遠城寺宗知, 岩崎 宏, 小松京子: 繊維腫症とくにデスマイドについて. *癌の臨床*, 19 : 553-556, 1973.
- 5) Kim, D. H., Goldsmith, H. S., Huvos, A. G.: Intra-abdominal desmoid tumor. *Cancer*, 27 : 1041-1045, 1971.
- 6) Pack, G. T., Ehlich, H. E.: Neoplasms of the anterior abdominal wall with special consideration of desmoid tumors: experience with 391 cases and a collective review of the literature. *International Abstract of Surgery*, 79 : 177-198, 1944.
- 7) Dahn, I., Jonsson N., Lundh G.: Desmoid tumours. A series of 33 cases. *Acta. Chir. Scand.*, 126 : 305-314, 1963.
- 8) Enzinger, F. M. Weiss, S. W.: *Soft tissue tumors*. 3rd ed. pp. 201-229, Mosby (St Louis), 1995.
- 9) 内田 厚・他: 尿路通過障害を生じた腹部デスマイドの1例. *泌尿紀要*, 41 : 821-823, 1995.
- 10) 黒澤太平・他: 類腱腫の  $^{67}\text{Ga}$ -citrate シンチグラフィによる検出. *臨放線*, 34 : 833-834, 1989.
- 11) 樽井吉仁・他: 家族性大腸ポリポーシス手術後に発生した腸間膜 desmoid の1例. *臨放線*, 35 : 749-752, 1990.
- 12) Naylor, E. W. et al.: Desmoid tumors and mesenteric fibromatosis in Gardner's syndrome. *Arch. Surg.*, 114 : 1181-1185, 1979.
- 13) Magic, D. et al.: Desmoid tumors in Gardner syndrome; use of computed tomography. *A. J. R.*, 142 : 1141-1145, 1984.
- 14) Miyaki, M. et al.: Coexistence of somatic and germ-line mutations of APC gene in desmoid tumors from patients with familial adenomatous polyposis. *Cancer Res.*, 53 : 5079-5082, 1993.
- 15) Meyers, M. A.: *Computed tomography of the gastrointestinal Tract, Including the Peritoneal Cavity and mesentery*. pp. 160-162, Springer-Verlag (New York), 1986.
- 16) Baron, R. L. et al.: Mesenteric desmoid tumor; sonographic and compute tomographic appearance. *Radiology*, 140 : 777-779, 1981.
- 17) Sundaram, M. M., Mcguire, M. H., Schajowicz, F.: Soft tissue masses: histologic basis for decreased signal (short T2) on T2-weighted MR images. *A. J. R.*, 148 : 1247-1250, 1987.
- 18) Matthew, T. et al.: Radiation therapy in the management of desmoid tumors. *Int. J. Radiation Oncology*, 42 : 1007-1014, 1998.
- 19) Bus, P. J. et al.: Treatment of mesenteric desmoid tumors with the antioestrogenic agent toremifene: case histories and an overview of the literature. *Eur. J. gastroenterol. Hepatol.*, 11 : 1179-1183, 1999.
- 20) Lunch, H. T. et al.: Use of doxorubicin and dacarbazine for the management of unresectable intraabdominal desmoid tumors in Gardner's syndrome. *Dis. Colon Rectum*, 37 : 260-267, 1994.
- 21) Smith, A. J. et al.: Surgical management of intra-abdominal desmoid tumors. *Br. J. Surg.*, 87 : 608-613, 2000.
- 22) Middleton, S. B. et al.: Surgery for large intra-abdominal desmoid tumors. *Dis. Colon Rectum*, 43 : 1759-1763, 2000.
- 23) Burke, A. P. et al.: Intra-abdominal fibromatosis. A pathologic analysis of 130 tumors with comparison of clinical subgroups. *Am. J. Surg. Pathol.*, 14 : 335-341, 1990.

(平成15. 2.28受付, 15. 6. 4受理)