

## S 状結腸間膜乳頭状腺癌の 1 例

箕面市立病院外科, 同 病理\*

水本 正剛 明石 英男 黒川 英司 山本 仁  
国府 育英 岸渕 正典 金 成弼 佐々木昌也  
青木 行俊 岡野 錦弥\*

大阪医科大学第 2 病理

森 浩 志

腸間膜の充実性腫瘍はまれな疾患であり、ほとんどすべての悪性腫瘍は肉腫か中皮腫である。左下腹部有痛性腫瘍を主訴に来院した42歳女性の S 状結腸間膜の乳頭状腺癌の 1 症例を経験した。腫瘍は手拳大の大きさで、S 状結腸間膜内に限局し、腫瘍とともに左半結腸切除術を施行した。病理組織検査では高分化乳頭状腺癌と未分化癌の混在を認め、卵巣の表層上皮性腫瘍（漿液性乳頭状腺癌+類内膜癌）に酷似していた。特殊染色や免疫組織化学的検討にて中皮腫や肉腫的性格は認められず、婦人科臓器、消化器臓器の綿密な検索を行ったが、結腸間膜以外に原発を疑う臓器は認められなかった。欧米および本邦の文献には同様の報告はきわめて少ない。この腫瘍の組織発生について考察を加えた。術後 3 年の現在、再発の兆候なく元気に日常生活を営んでいる。

**Key words:** neoplasms of peritoneum/mesentery/mesocolon, peritoneal serous papillary carcinoma, ovarian neoplasms

### はじめに

腸間膜および腹膜原発の悪性腫瘍はまれな疾患であり、そのほとんどは肉腫か中皮腫である。われわれは、結腸間膜に限局する腺癌で、その組織像が卵巣上皮性腫瘍に酷似し、あたかも異所性卵巣腫瘍であるかのような症例を経験した。欧米では以前から腹膜原発の乳頭状癌の症例集計があり<sup>1)</sup>、最近本邦でも結腸間膜乳頭状癌が 1 例報告された<sup>2)</sup>。この腹膜・腸間膜腺癌の発生源地に関して若干の考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：42歳，女性。

主訴：左下腹部有痛性腫瘍。

家族歴：父と 2 人の兄が直腸/結腸癌に罹患。

既往歴：昭和38年に虫垂切除術，同51年に急性乳腺炎に罹患した。

現病歴：昭和63年12月ごろから左下腹部に痛みを自覚するようになり，平成元年1月17日，当院内科を初診し同部位の腫瘍を指摘された。2月15日，腹部 computed tomography (以下 CT と略) 検査にて左卵

巣癌を疑われ，3月1日，手術のため当院婦人科に入院した。

入院時現症：身長158cm，体重51kg，血圧90/50 mmHg，脈拍数78/分，貧血・黄疸なし。左下腹部に手拳大の有痛性腫瘍を触知した。

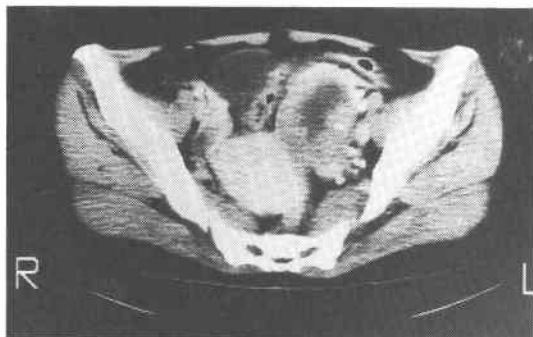
検査所見：血液一般検査，肝機能検査で特に異常を認めず，胸部 X 線検査，ECG も正常であった。

腫瘍マーカーは  $\alpha$ -fetoprotein (AFP) 5ng/ml 以下，carcinoembryonic antigen (CEA) 0.5ng/ml 以下，carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9) 14U/ml，tissue polypeptide antigen (TPA) 77U/l と正常値であったが，cancer antigen 125 (CA125) は130U/ml と上昇を認めた。

腹部エコー，腹部 CT にて左卵巣と思われる部位に 8×7×6cm の充実性で，中心部壊死に陥る腫瘍像を得た (Fig. 1)。

左卵巣癌疑いの診断のもとに，3月3日婦人科で開腹術を施行した。卵巣は左右とも腫大なく，肉眼的には正常であり，腫瘍は S 状結腸間膜に存在していた。腫瘍の一部を生検し，腹膜転移，肝転移，大動脈周囲リンパ節転移などのないことを確認し，mitomycin-C (以下 MMC) 10mg を腹腔内に注入し，一旦閉腹した。

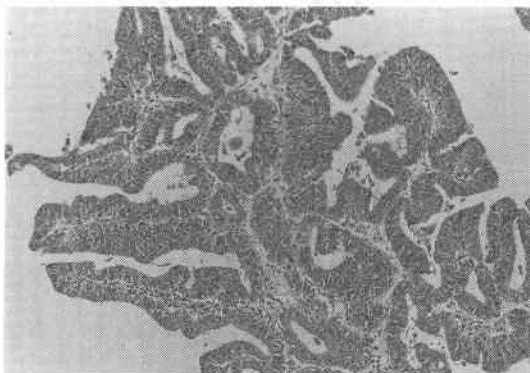
**Fig. 1** Pelvic computed tomography shows a fist-sized tumor with central necrosis on the left side of uterus.



**Fig. 2** Cut surface of the tumor in the mesocolon. Note the expanding growth, thickened fibrous capsule and normal sigmoid mucosa.



**Fig. 3** Microscopic appearance of the tumor is characterized by a papillary pattern. Psammoma bodies are not present. (H.E., ×33)



生検組織診断は乳頭状腺癌であった。

術後、外科に転科して、ドレーン抜去前に MMC 10 mg をダグラス窩に注入し、消化管および腎尿路系を精査した。結腸ファイバースコープ検査にて肛門から 58cm 口側に小隆起性病変が発見され、生検を行ったところ、Group 4 (高分化管状腺癌疑い) であり、腸間膜腫瘍の組織像と明らかに異なっていた。この生検診断の結果を受けて 3 月 23 日再開腹術を施行した。

手術所見：前回の手術創に沿い下腹部正中切開にて開腹する。ダグラス窩には前回の手術による癒着が強かった。腫瘍は S 状結腸間膜内に塊状にあり、限局性で、周囲に浸潤する傾向はなかった。結腸癌の R<sub>2</sub>リンパ節郭清に準じて、リンパ節を郭清し、下行結腸の粘膜内癌と思われる小隆起性病変を含めて、左半結腸切除術を行った。腫瘍側の左卵巢、卵管を合併切除し、横行結腸と直腸は端端吻合で再建した。

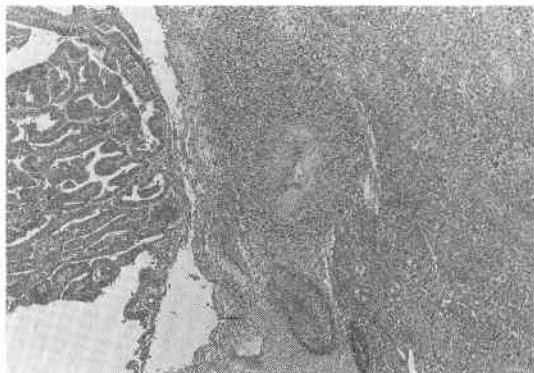
肉眼所見：腫瘍は S 状結腸間膜に限局し、下行結腸粘膜の小隆起性病変とは明らかに離れて存在していた。腫瘍全体が厚い線維性被膜に包まれて、内部は数個に区分されているが、いずれも被膜に覆われており、周囲への浸潤はなく、膨張性の増殖を示していた (Fig. 2)。

組織学的所見：腫瘍の大半は楕円形ないし長円形核と中等量の細胞質を有する異型腺上皮細胞の乳頭状増殖からなる papillary adenocarcinoma であるが (Fig. 3)、一部に高円柱上皮細胞が偽重層して子宮内膜腺類似の管状腺管を形成する部 (endometrioid adenocarcinoma) もみられた。Psammoma body は認められなかった。さらに一部は腺腔形成を示さず、大きな充実性細胞巣を作って髄様に増殖する poorly

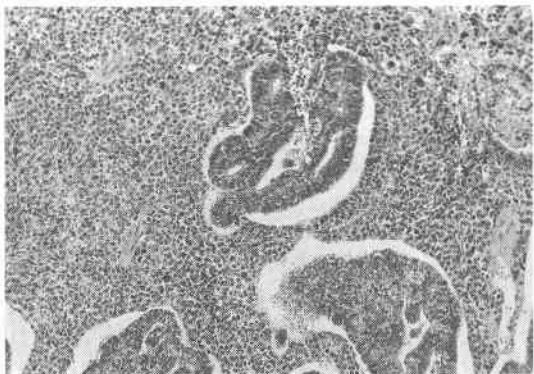
differentiated carcinoma あるいは sarcoma 様の組織像を示した。両者が相接して存在し、一見衝突腫瘍のように見える部分 (Fig. 4)、また sarcoma 様組織が adenocarcinoma の間質となる部分 (Fig. 5) や両者の移行が伺われる部分もみられた。

特殊染色および免疫組織化学染色：PAS 染色に腺癌の部分は不染であるが、sarcoma 様部分の少数の大型細胞に大小多数のジアスターゼ抵抗性の PAS 陽性硝子球がみられた。Alcian blue 染色には癌細胞、間質基質ともに不染だった。鍍銀標本で低分化癌の細胞集団内に嗜銀線維はほとんど存在せず、AZAN-Mallory 染色でも青染線維の増生はみられなかった。Grimelius および Masson-Fontana 染色で好銀および嗜銀顆粒は認められなかった。免疫組織化学染色で、EMA

**Fig. 4** Micrograph showing seemingly a collision tumor of papillary adenocarcinoma (left) and undifferentiated carcinoma (right). (H.E.,  $\times 13$ )



**Fig. 5** Spaces between structures of the adenocarcinoma are occupied by the undifferentiated carcinoma. (H.E.,  $\times 33$ )

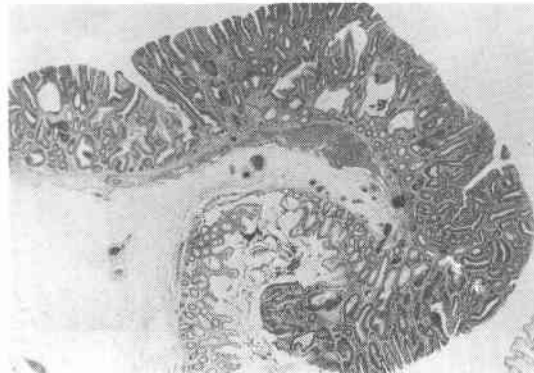


(epithelial membrane antigen) および keratin は腺癌部の大部分の細胞と sarcoma 様部の少数の細胞に陽性, vimentin は两部分に陽性, CEA および NSE (neuron specific enolase) は两部分ともに陰性だった。

以上の肉眼的および病理組織学的所見は, この腸間膜腫瘍が sarcoma 様部分を含めて腫瘍全体が腺癌であり, 肉腫でも悪性中皮腫でもないことを示している。組織学的類似性は卵巣の表層上皮性腫瘍 (漿液性乳頭状嚢胞腺癌+類内膜癌) に求められた<sup>3)</sup>。

下行結腸の直径1.0cmの小隆起性病変は粘膜内にとどまる高分化管状腺癌(Fig. 6)であった。この癌組織はCEA染色が陽性であった。このことから腸間膜腫瘍はこの下行結腸粘膜からの転移であることは否定された。なお左卵巣および左卵管には腫瘍を認めず,

**Fig. 6** Micrograph of mucosal tumor in the descending colon shows well differentiated tubular adenocarcinoma. (H.E.,  $\times 5$ )



郭清したすべてのリンパ節に転移は認められなかった。

術後経過: しばらく頻回の下痢を訴えたが, 次第に軽快した。4月26日から卵巣癌の化学療法に準じて, シスプラチン100mgとMMC 10mg, エトポシド50mgを3日間連続投与し, 5月24日軽快退院した。退院時のCA-125の値は15U/ml以下と正常化した。現在外来にて経過観察中であるが, CA-125の値の上昇もなく, 再発の兆候を認めていない。

#### 考 察

腹膜および腸間膜原発腫瘍はきわめてまれな疾患であり, そのほとんどすべては肉腫あるいは中皮腫であると考えられてきた<sup>4)</sup>。ところが, 1959年 Swerdlow<sup>5)</sup>が卵巣の乳頭状嚢胞腺癌に似た組織像を示す骨盤腹膜中皮腫の1例を報告して以来, Kannersteinら<sup>1)</sup>, Foyleら<sup>7)</sup>, Chenら<sup>8)</sup>, Bollingerら<sup>9)</sup>, Dalrympleら<sup>10)</sup>の集計報告があり, 腹膜悪性中皮腫とは異なり, 腹膜原発の乳頭状腺癌がまれながら存在することが明らかになってきた。Evansら<sup>11)</sup>は子宮腺筋症兼腺腫性子宮内膜増殖症, および卵巣子宮内膜症のため, 子宮切除兼両側卵巣切除を受けた女性に, 16年後S字結腸間膜に腺癌(卵巣の明細胞癌に類似)が発生したことを報告している。

それらの報告例を検討してみると, ほとんどの症例は病期の進行した腹膜原発の乳頭状腺癌であった。すなわち, 試験開腹時あるいは剖検時に腹膜に多数の結節を形成している症例や腹水が貯留し, 癌性腹膜炎の状態の症例であった。腹膜のうちでも腸間膜の原発であろうと考えられる腺癌の症例は, 論文内容を検討し

た限りでは Kannerstein ら<sup>11)</sup>の集計した15症例の中の3症例, Evans ら<sup>11)</sup>の1例および本邦の阿部ら<sup>2)</sup>の1例のみであった。

われわれも当初, 本症例を転移性の腸間膜腫瘍あるいは腹膜悪性中皮腫を疑い, 婦人科の試験開腹術時およびその後再手術までの期間に消化器, 泌尿器の精査を行ったが, 下行結腸に小さな粘膜内癌を認めたのみで, 再手術時の詳細な検索にても腹腔内臓器に原発巣と思われる病変は認められなかった。また同時に切除した左卵巣と卵管にも腫瘍性病変は認められなかった。肉腫や悪性中皮腫との鑑別のため, 特殊染色を施して病理組織学および免疫組織化学的に検討したが, 肉腫様増殖を示した腫瘍部分にも肉腫や中皮腫の性格は認められなかった。大半が乳頭状腺癌の組織像を示したことから肉腫様増殖を示した腫瘍部分も未分化な腺癌と考えた。

Yannopoulos ら<sup>9)</sup>は腸間膜原発の充実性腫瘍の詳細な集計と組織学的検討を1963年に報告したが, そのうちの症例番号44に, たまたま見つかったS状結腸間膜の径1cmの嚢胞腺腫の報告があり, Wolff 管か Müller 管の遺残がその腫瘍の発生源地であろうと考察している。

われわれは卵巣形成に至る原始生殖細胞群のアーメーバー運動に, この“卵巣上皮性腫瘍”の発生源地があるのではないかと考察する。すなわち, 卵巣は胎生初期に卵黄嚢壁内に出現した原始生殖細胞群 (primordial germ cell) が遊走し, 生殖堤域 (genital ridge) に侵入することにより形成される。卵巣表面を覆う胚上皮 (germinal epithelium) は本来, 腹膜中皮と同じく体腔上皮 (coelomic epithelium) を起源とする<sup>12)</sup>。原始生殖細胞 (後の卵細胞) の存在によって体腔上皮が胚上皮となり, その胚上皮が卵巣上皮性腫瘍の発生源組織となると考えられている<sup>13)14)</sup>。原始生殖細胞が後腸 (hindgut) の背側腸間膜に沿って生殖堤へアーメーバー運動により移動する途中に, その一部が背側腸間膜内に取り残され, 生後もS状結腸間膜に遺残することは十分にありえることである。卵巣におけると同様な機序で, 腸間膜に遺残していた原始生殖細胞が腸間膜に侵入した腹膜中皮を胚上皮へと変え, それが癌化して, 一見異所性卵巣癌のように見える本腫瘍が発生したと推測される。

卵巣の表層上皮性悪性腫瘍には漿液性腺癌と粘液性腺癌が多い。これまでに報告されている腹膜・腸間膜原発腺癌の多くは漿液性腺癌であるが, 卵巣原発腫瘍

と同じく粘液性腺癌, 類内膜癌, 明細胞癌および悪性中胚葉性混合腫瘍も報告されている<sup>15)</sup>。

この種の腫瘍は阿部ら<sup>2)</sup>が述べているように, 卵巣腫瘍と同様, われわれの症例でもCA-125が腫瘍マーカーとして有用であった。

#### 文 献

- 1) Kannerstein M, Churg J, McCaughey WTE et al: Papillary tumors of the peritoneum in women: Mesothelioma or papillary carcinoma? *Am J Obstet Gynecol* 127: 306-314, 1977
- 2) 阿部 毅, 佐々木迪郎, 中島博史ほか: 横行結腸間膜乳頭状癌の1例. *日臨外医会誌* 52: 1629-1632, 1991
- 3) Scully RE: Tumors of the ovary and mal-developed gonads. In: *Atlas of Tumor Pathology*. 2nd series, Fascicle 16, Armed Forces Institute of Pathology, Washington DC, 1982, p53-151
- 4) 下山孝俊, 北里精司, 中尾 丞ほか: 原発性後腹膜ならびに腸間膜腫瘍. *臨と研* 56: 472-480, 1979
- 5) Yannopoulos K, Stout AP: Primary solid tumors of the mesentery. *Cancer* 16: 914-927, 1963
- 6) Swerdlow M: Mesothelioma of the pelvic peritoneum resembling papillary cystadenocarcinoma of the ovary. *Am J Obstet Gynecol* 77: 197-200, 1959
- 7) Foyle A, Al-Jabi M, McCaughey WTE: Papillary peritoneal tumors in women. *Am J Surg Pathol* 5: 241-249, 1981
- 8) Chen KTK, Flam MS: Peritoneal papillary serous carcinoma with long-term survival. *Cancer* 58: 1371-1373, 1986
- 9) Bollinger DJ, Wick MR, Dehner LP et al: Peritoneal malignant mesothelioma versus serous papillary adenocarcinoma: A histochemical and immunohistochemical comparison. *Am J Surg Pathol* 13: 659-670, 1989
- 10) Dalrymple JC, Bannatyne P, Russel P et al: Extraovarian peritoneal serous papillary carcinoma: A clinicopathologic study of thirty-one cases. *Cancer* 64: 110-115, 1989
- 11) Evans H, Yates WA, Palmer WE et al: Clear cell carcinoma of the sigmoid mesocolon: A tumor of the secondary müllerian system. *Am J Obstet Gynecol* 162: 161-163, 1990
- 12) Sadler TW: *Langmann's Medical Embryology*. 5th edition, Williams & Wilkins Co., Baltimore, 1984, p247-280
- 13) Blaustein A: Surface (germinal) epithelium

- and related ovarian neoplasms. *Pathol Annu (Part 1)* 16 : 247—294, 1981
- 14) 寺島芳輝：卵巣腫瘍の組織発生。坂元正一，滝一郎，室岡一編。産婦人科Mook, 28巻, 金原出版, 東京, 1984, p9—29

- 15) Lee KR, Verma U, Belinson J: Primary clear cell carcinoma of the peritoneum. *Gynecol Oncol* 41 : 259—262, 1991

### **A Case Report of Papillary Adenocarcinoma of the Sigmoid Mesocolon**

Seigou Mizumoto, Hideo Akashi, Eizi Kurokawa, Hitoshi Yamamoto, Ikuo Kokubu,  
Masanori Kishibuchi, Seiheitsu Kin, Masaya Sasaki, Yukitoshi Aoki,  
Hiroshi Mori\*\* and Kinya Okano\*

Department of Surgery, and Pathology\*, Minoh City Hospital

\*\*Second Department of Pathology, Osaka Medical College

Reports of primary solid tumors of the mesentery are very rare in the literature and almost all reported malignant solid tumors of the mesentery are sarcomas and mesotheliomas. We experienced a case of papillary adenocarcinoma of the sigmoid mesocolon. A 42-year-old Japanese woman was admitted to this hospital because of a tender fist-sized tumor in the lower left quadrant of her abdomen. We performed a left hemicolectomy and a left salpingoophorectomy. Microscopically, the specimen was well-differentiated papillary adenocarcinoma mixed with undifferentiated carcinoma. By preoperative examinations and repeated intraoperative examination, except for this tumor in the mesocolon, we could not find any primary or metastatic foci of adenocarcinoma in her abdomen. The histological pattern of the adenocarcinoma is similar to that of germinal epithelial tumor of the ovary (serous papillary adenocarcinoma, partly with endometrioid adenocarcinoma). The patient is alive and doing well 3 years after this major operation and no signs of recurrence can be detected.

**Reprint requests:** Seigou Mizumoto Department of Surgery, Minoh City Hospital  
5-7-1 Kayano, Minoh City, 562 JAPAN

---