

S 状結腸原発の良性線維性組織球腫の 1 例

糸魚川総合病院外科¹⁾, 富山医科薬科大学第 2 外科²⁾

田内 克典¹⁾²⁾ 鈴木修一郎¹⁾ 長田 拓哉¹⁾

S 状結腸に原発した良性線維性組織球腫 (benign fibrous histiocytoma: BFH) の 1 手術例を経験したので報告する。症例は63歳の男性, 主訴は発熱および腹痛, 注腸造影, 内視鏡, CT, magnetic resonance imaging (MRI), 血管造影にて S 状結腸壁内悪性腫瘍もしくは強度の炎症性変化と診断し S 状結腸切除・回腸部分切除術を施行した。病理組織学的所見では錘体形の腫瘍細胞が storiform pattern をとり漿膜下層から筋層を押し上げるように発育し, 免疫組織学的に histiocyte の性格をもち, 核分裂像は認められず異型性に乏しいことより BFH と診断した。術後経過は順調で再発の兆候はない。

消化管原発の線維性組織球腫は, 内外で15例の悪性線維性組織球腫 (malignant fibrous histiocytoma; MFH) の報告を認めるが BFH の報告はなく, 自験例が最初の報告例である。

Key words: benign fibrous histiocytoma, malignant fibrous histiocytoma, sigmoid colon

はじめに

悪性線維性組織球腫 (malignant fibrous histiocytoma; MFH) は, 主に四肢に好発する軟部組織腫瘍で¹⁾, 消化管に発生することはきわめてまれであり, 文献的に内外で15例の報告^{2)~16)}を認めるに過ぎない。また, 良性線維性組織球腫 (benign fibrous histiocytoma; BFH) は, 真皮および皮下組織に好発し¹⁷⁾, 肺¹⁸⁾, 骨¹⁹⁾²⁰⁾, 舌²¹⁾, 気管²²⁾, 腎臓²³⁾, 腎被膜²⁴⁾, 眼窩²⁵⁾, 耳下腺²⁶⁾などを原発とする報告も散見されるが, 消化管に生じた報告は認められない。

われわれは発熱および腹痛を主訴として発症した, S 状結腸を原発とする BFH の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者: 63歳, 男性

主訴: 発熱, 腹痛

既往歴: 37歳, 胃切除術(胃潰瘍), 43歳, 痔核根治術, 50歳, 肺結核腫の疑いで試験開胸術。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成 4 年 4 月 13 日より発熱, 腹痛が出現したため 4 月 14 日当院内科受診。

現症: 血圧 146/90 mmHg, 脈拍 103/分, 体温 38.3°C, 胸腹部に手術痕を, 右下腹部に圧痛を認めた。

検査所見: 胸部 X 線検査では, 開胸術による変化のみ, 腹部 X 線検査では少量の小腸ガスを認めた。血液生化学検査では白血球数の増多および CRP 高値など急性炎症所見を認めた (Table 1)。

経過: 抗生物質の投与により急性炎症反応は軽減したが, 微熱が継続した。免疫電気泳動で慢性感染症や膠原病などが疑われたが, LE test (-), 抗核抗体 20

Table 1 Laboratory data

Blood analysis		α_1 -gl	4.2 %
RBC	457 × 10 ⁴ /mm ³	α_2 -gl	9.9 %
Hb	13.0 g/dl	β -gl	8.3 %
Ht	41.4 %	γ -gl	18.8 %
WBC	15,000 /mm ³	T-Bil	0.8 mg/dl
Seg	67 %	D-Bil	0.4 mg/dl
Lym	27 %	GOT	16 IU/l
Mono	6 %	GPT	7 IU/l
Plt	17.0 × 10 ⁴ /mm ³	ALP	213 IU/l
Urinalysis		LDH	214 IU/l
protein	22 mg/dl	γ GTP	7 IU/l
glucose	2.0 g/dl	CPK	75 IU/l
WBC	5-6 /F	Ch-E	4.9 KIU/l
Tumor marker		BUN	16.6 mg/dl
CEA	3.2 ng/ml	Cre	0.8 mg/dl
CA 19-9	12 U/ml	Na	142 mEq/l
AFP	1.7 ng/ml	K	4.3 mEq/l
SLX	37 U/ml	Cl	103 mEq/l
Blood chemistry		CRP	13.3 mg/dl
TP	7.7 g/dl	BS	113 mg/dl
Alb	4.5 g/dl	HgA1C	4.7 %

<1993年 2 月 10 日受理> 別刷請求先: 田内 克典

〒930-01 富山市杉谷 2630 富山医科薬科大学医学部第 2 外科

倍未満, 抗DNA抗体4IU/mlであった。

腹部CT所見: S状結腸から直腸S状部(Rs)に直径約5cmの不規則に造影される腫瘤陰影を認め回腸との癒着も示唆された(Fig. 1)。

注腸造影検査所見: Rsでの内腔閉塞を認め, 内科入院となった(Fig. 2A)。

大腸内視鏡検査所見: 肛門縁より30cmの部位で壁外性の圧迫による狭窄があり口側への内視鏡挿入は不能であった。粘膜面の変化はなく, 内視鏡下に造影剤を注入するとわずかに口側が造影された(Fig. 2B)。

Fig. 1 Abdominal computed tomography shows a solid mass, enhanced irregularly, in the rectosigmoid colon.

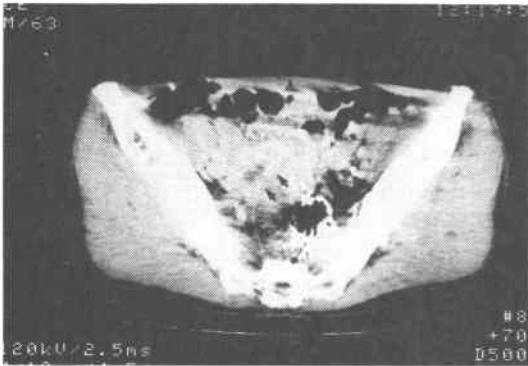
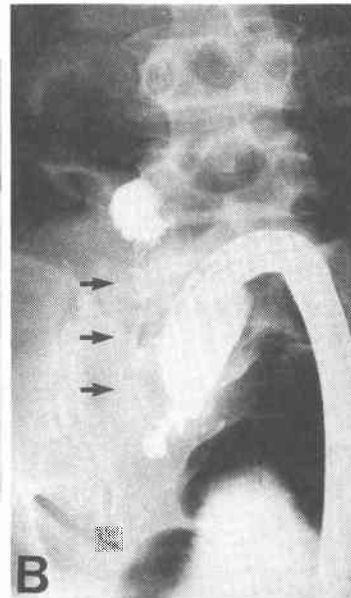
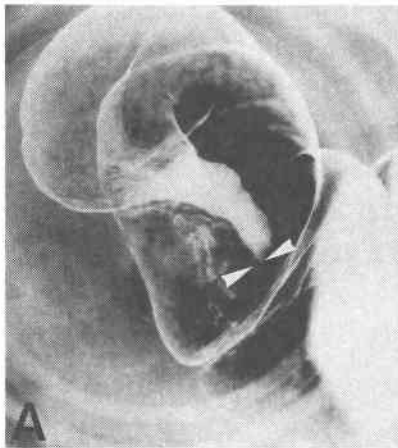


Fig. 2 A: Barium enema revealed a complete obstruction of the sigmoid colon.
B: Endoscopic colonogram shows a severe stenosis of the rectosigmoid colon.



Magnetic resonance imaging (MRI) 所見: S状結腸からRsにかけて壁の肥厚がみられ, 周囲脂肪組織に異常密度が一部認められた。回腸遠位部も同部位に癒着していた。腫瘍様の被包化された局面がみられず, 浸潤性増殖もみられないことから炎症性の癒着を思わせる所見であった(Fig. 3)。

腹部血管造影所見: S状結腸動脈およびRs枝領域に濃染像がみられた。同部には辺縁動脈のencasementはみられないが, 直動脈の不整および血管新生が明らかであり, 破壊性変化の強い炎症性疾患が疑われたが, 悪性疾患も否定できなかった(Fig. 4)。

S状結腸壁内腫瘤の診断で5月19日当科転科し5月25日手術施行した。

手術所見: 下腹部正中切開で開腹すると, 腹水, 腹膜播種性転移はなく, S状結腸からRsに終末回腸が強固に癒着し腫瘤状に触知した。転移回腸を剝離すると結腸漿膜に黄色調の腫瘤を認めた。Rsを含めてS状結腸切除術を行い, 終末回腸も11cm切除した。

摘出標本肉眼所見: 結腸, 回腸ともに粘膜に著変なく, 結腸漿膜側を中心に4×3cmの黄色の腫瘤を認めた(Fig. 5)。

病理組織学的所見: 錘体形の細胞がstoriform patternをとり, 漿膜下層から筋層を押し上げるように発育している。細胞核は小型で大小は少なく, 巨核細胞

Fig. 3 Magnetic resonance imaging shows thickening of the wall and abnormal density area of the rectosigmoid colon.

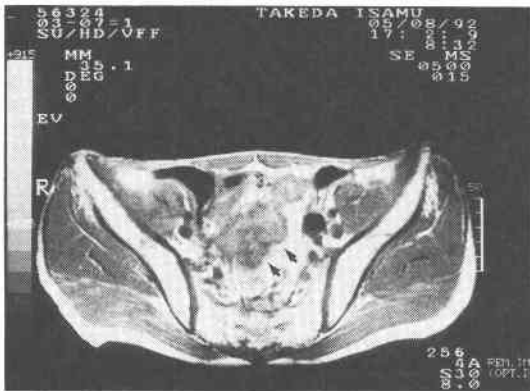
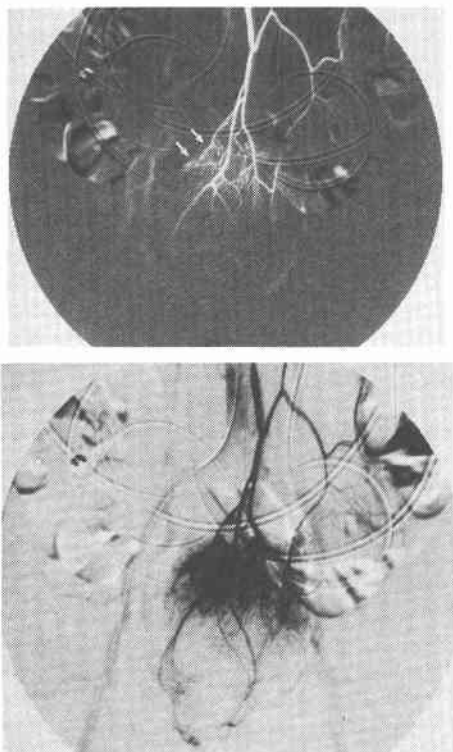


Fig. 4 Digital subtraction angiography of Inferior Mesenteric Artery shows irregular changes of vasa recta (upper half) and pooling (lower half) at sigmoidal artery and Rs branch.



および核分裂像は認められない。免疫組織学的には CD (Cluster of Differentiation) 68, lysozyme, α -1 antitrypsin, vimentine 陽性であり, histiocyte と考え

Fig. 5 Gross appearance of the resected specimen shows subserous tumor (left half). Mucosal surface is smooth (right half).

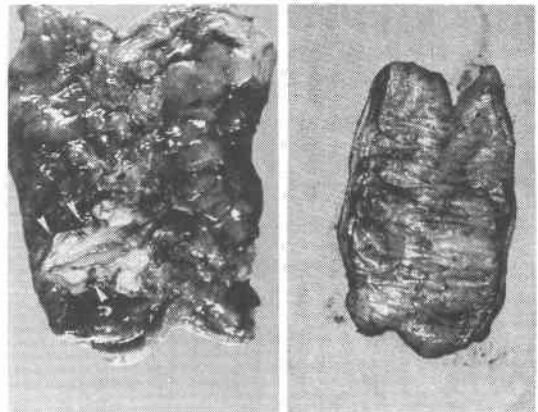
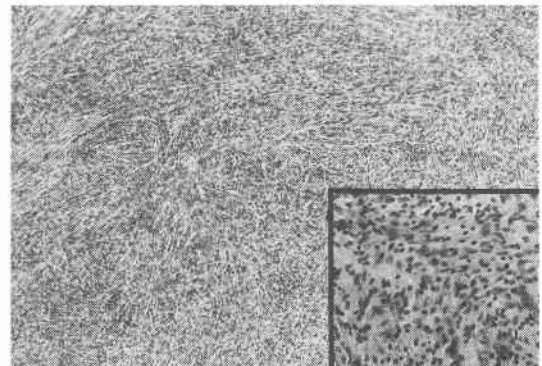


Fig. 6 Microscopic appearance of the tumor shows the storiform pattern consisting of spindle-shaped cells. The nuclei of the tumor cells are small and round. No mitosis and giant cell is noted (H & E \times 40, inset \times 100).



る。紡錘形細胞周囲には多数のリンパ球浸潤を伴い、CD3陽性であることより T 細胞である。組織学的に核分裂像を伴わないこと、異型性に乏しいことより良性線維性組織球腫と診断した (Fig. 6)。切除したリンパ節には転移を認めなかった。患者は19病日に退院し通院中である。

考 察

MFH は O' Brien ら²⁷⁾が悪性線維性黄色腫とし報告したのが最初で、高齢者の軟部組織には最も多い肉腫であるが¹⁾、消化管にはきわめてまれであり、内外に15例の報告²⁾⁻¹⁶⁾があるに過ぎない。組織学的には線維芽細胞様と組織球様細胞の中間の形態を示す細胞より

なり、多形成があり、腫瘍性の巨細胞も認められ、それらが storiform pattern を示すことが特徴とされている¹⁾。一方 BFH は真皮および皮下組織に好発し¹⁷⁾、肺、腎臓、耳下腺などを原発とする報告¹⁸⁾⁻²⁶⁾も散見されるが、消化管に生じた報告は認められない。組織学的には紡錘形の線維芽細胞様の細胞、円形の組織球様細胞より成り storiform または cartwheel pattern を示し、多数の炎症細胞、form cells, siderophages を伴う²⁸⁾。自験例では、紡錘形の細胞が storiform pattern をとり、免疫組織学的に histiocyte の特徴を備えていた¹⁴⁾¹⁵⁾²¹⁾²⁶⁾。また、細胞核は小型で大小は少なく異型性に乏しく、巨核細胞および核分裂像を認めないことより良性線維性組織球腫と診断した。

自験例は発熱および下腹部痛で発症し、術前大腸内視鏡検査、CT、MRI、腹部血管造影にて S 状結腸の壁内腫瘤と診断したが、腫瘍性の変化か強度な炎症性変化か確認が得られなかった。消化管の MFH の報告では画像診断の詳細な検討はなく、比較検討は困難であるが、本症例の画像が今後の消化管の組織球腫の診断の参考になるものと思われる。

消化管の MFH は予後不良であり現在まで 5 年生存例の報告は認められず、治療法も切除以外に有効な方法は認められない。BFH は一般に予後良好であるが再発例もあり¹⁹⁾²⁹⁾、BFH は MFH の benign counterpart を表現している可能性を指摘した報告²⁰⁾も認められる。自験例は治癒切除が行われ組織学的には良性であり予後が期待されると思われる。

われわれが検索しえたかぎり、内外を含め消化管原発の BFH の報告はなく、自験例が最初の報告である。

稿を終えるにあたり、御指導をいただいた富山医科薬科大学第 2 病理学、川口 誠、小泉富美朝先生に深謝します。

文 献

- 1) Weiss SW, Enzinger FM: Malignant fibrous histiocytoma. An analysis of 200 cases. *Cancer* 41: 2250-2266, 1978
- 2) Verma P, Chandra U, Bhatia PS: Malignant histiocytoma of the rectum: Report of a case. *Dis Colon Rectum* 22: 179-192, 1979
- 3) Sewell R, Levine BA, Harrison GK et al: Primary malignant fibrous histiocytoma of the intestine: Intussusception of a rare neoplasm. *Dis Colon Rectum* 23: 198-201, 1980
- 4) Levinson MM, Tsang D: Multicentric malignant fibrous histiocytoma of the colon. Report of a case and review of the subject. *Dis Colon Rectum* 25: 327-331, 1982
- 5) Lin JI, Kim CK, Tsung SH et al: Malignant fibrous histiocytoma of the ileum. *Dis Colon Rectum* 26: 335-338, 1983
- 6) Waxman M, Faegenburg D, Waxman JS et al: Malignant fibrous histiocytoma of the colon associated with diverticulitis. *Dis Colon Rectum* 26: 339-343, 1983
- 7) Rubinni M, Marzola A, Spanedda R et al: Primary malignant fibrous histiocytoma of the sigmoid colon: a case report. *Int J Surg Sci* 13: 299-302, 1983
- 8) Spagnoli LG, Dell'Isola C, Sportelli G et al: Primary malignant fibrous histiocytoma of storiform-pleomorphic type: a case report of an ano-rectal localization. *Rumori* 70: 567-570, 1984
- 9) Kukora JS, Bagnato J, Gatling R et al: Fibrous histiocytoma of colon and pancreas. Report of 2 unusual cases and review of the literature. *Dig Surg* 2: 180-184, 1985
- 10) Singh G, Gupta S, Gupta S: Malignant fibrous histiocytoma of solitary jejunal diverticulum. *J Surg Oncol* 28: 273-276, 1985
- 11) Shibuya H, Azumi N, Onda Y et al: Multiple primary malignant fibrous histiocytoma of the stomach and small intestine. *Acta Pathol Jpn* 35: 157-164, 1985
- 12) Baratz M, Ostrzega N, Michowitz M et al: Primary inflammatory malignant fibrous histiocytoma of the colon. *Dis Colon Rectum* 29: 462-465, 1986
- 13) 矢作和也, 荒井康道, 松本純一ほか: 著明な腸管狭窄を来した結腸 malignant fibrous histiocytoma の 1 例. *胃と腸* 21: 215-219, 1986
- 14) 佐々木亮, 石原法子, 渡辺英伸: 横行結腸原発の悪性線維性組織球腫. *病院病理* 5: 62, 1987
- 15) Satake T, Matsuyama M: Cytologic features of ascites in malignant fibrous histiocytoma of the colon. *Acta Pathol Jpn* 38: 921-928, 1988
- 16) 吹野俊介, 深田民人, 岡野一広ほか: 盲腸原発の悪性線維性組織球腫の 1 例. *日外会誌* 91: 1752-1755, 1990
- 17) Fletcher CDM: Benign fibrous histiocytoma of subcutaneous and deep soft tissue: a clinicopathologic analysis of 21 cases. *Am J Surg Pathol* 14: 801-809, 1990
- 18) 沼田昭彦, 増田知重, 岡安健至ほか: 小児原発 benign fibrous histiocytoma の 1 例. *日胸外会誌* 37: 350-354, 1989
- 19) Matsumoto T: Benign fibrous histiocytoma involving the end of long bone. *Skeletal Radiol* 19: 561-566, 1990

- 20) Hoeffel JC, Boman-Ferrand F, Tachet F: So-called benign fibrous histiocytoma: report of a case. *J Pediatr Surg* 27 : 672—674, 1992
- 21) Takimoto T, Ishikawa S, Umeda R: Fibrous histiocytoma of the tongue base. *Auris Nasus Larynx* 16 : 223—236, 1990
- 22) Tagge E, Yunis E, Chopyk J et al: Obstructive endobronchial fibrous histiocytoma: potential for lung salvage. *J Pediatr Surg* 26 : 1067—1069, 1991
- 23) Sakakibara N, Seki T, Maru A et al: Benign fibrous histiocytoma of the kidney. *J Urol* 142 : 1558—1559, 1989
- 24) Kobayashi S, Yamadori I, Ohmori M et al: Benign fibrous histiocytoma of the renal capsule. *Acta Pathol Jpn* 40 : 217—220, 1992
- 25) Jacomb-Hood J, Moseley IF: Orbital fibrous histiocytoma: computed tomography in 10 cases and a review of radiological findings. *Clin Radiol* 43 : 117—120, 1991
- 26) Wiley EL, Stewart D, Brown M et al: Fibrous histiocytoma of the parotid gland. *Am J Clin Pathol* 97 : 512—516, 1992
- 27) O'Brien JE, Stout AP: Malignant fibrous xanthomas. *Cancer* 17 : 1445—1455, 1964
- 28) Enzinger FM, Weiss SW: *Soft tissue tumors*. 2nd ed. CV Mosby, St Louis, 1988, p223—250
- 29) Franquemont DW, Cooper PH, Shmookler BM et al: Benign fibrous histiocytoma of the skin with potential for local recurrence. a tumor to be distinguished from dermatofibroma. *Mod Pathol* 3 : 158—163, 1990

A Case Report of Benign Fibrous Histiocytoma of the Sigmoid Colon

Katsunori Tauchi¹⁾²⁾, Shyuuichiro Suzuki¹⁾ and Takuya Nagata¹⁾²⁾

¹⁾Department of Surgery, Itoigawa General Hospital

²⁾The Second Department of Surgery, Toyama Medical and Pharmaceutical University, School of Medicine

A case of primary benign fibrous histiocytoma (BFH) of the sigmoid colon is reported. The patient, a 63-year-old man, complained of high fever and abdominal pain. A barium enema, endoscopic study, computed tomography, magnetic resonance imaging and abdominal angiography revealed an intramural mass in the sigmoid colon, but we could not distinguish between a malignant tumor and a severe inflammatory change. A sigmoidectomy and partial resection of the ileum was performed. Microscopically, spindle-shaped cells with a storiform pattern were seen from the subserosa to the muscular layer. They had immunohistochemical characteristics of histiocytes, few mitoses and mild atypia. The histological diagnosis was BFH. The postoperative course was uneventful and he showed no sign of recurrence. There are 15 previous reports of malignant fibrous histiocytoma of the gastrointestinal tract, but no report of BFH of the gastrointestinal tract was found in the literature. This is the first reported case of primary BFH in the gastrointestinal tract.

Reprint requests: Katsunori Tauchi Second Department of Surgery, Toyama Medical and Pharmaceutical University School of Medicine
2630 Sugitani, Toyama, 930-01 JAPAN