

小腸間膜より発生した大腸ポリポース非合 併腹腔内デスマイド腫瘍の1 治験例

岐阜市民病院外科

長田 真二 種村 廣巳 大下 裕夫

症例は61歳の男性で、腹部腫瘍を主訴に当科受診した。既往症として、3年前に早期胃癌にて幽門側胃切除術を施行されている。腹部CT、超音波やMRIにて腸間膜原発の腫瘍を疑い開腹手術を施行した。手術所見では腫瘍はトライツ靱帯より約110cmの空腸間膜より発生していたが、脈管とは剝離可能で腸管の合併切除することなく全摘出を行い得た。切除標本は11.5×10.5×10.5cm大で、断面は充実性で乳白色を呈し、出血や壊死はみられなかった。組織学的には線維芽細胞の増殖と間質の硝子化を示すデスマイド腫瘍であった。術後2年6か月の現在再発の徴候は認めていない。

大腸ポリポースを伴わない本症の本邦における報告は、これまでに自験例も含め39例と非常にまれであるのでその特徴につき検討した。

Key word: intra-abdominal desmoid tumor

はじめに

大腸ポリポース、とくに Gardner 症候群に合併した腹腔内デスマイド腫瘍はよく知られているが¹⁾²⁾、単独で腹腔内に発生することはまれである。われわれは、早期胃癌術後3年目に小腸間膜より発生した腹腔内デスマイド腫瘍の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：61歳、男性

主訴：腹部腫瘍

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：1989年9月、当科にて早期胃癌に対し、2群リンパ節廓清を伴う幽門側胃切除術を施行した（高分化型腺癌，P₀，H₀，m，n₀，ly₁，v₀，stage I，絶対治癒切除）。その際、術中腸間膜に腫瘍はみられなかった。

現病歴：1992年2月頃より腹部腫瘍に気づくも、自発痛や圧痛が認められないため放置していた。3月頃より腹部膨満感が出現するようになったため同年5月18日当科入院となった。

入院時現症：身長163cm，体重60kg。血圧126/70 mmHg，脈拍60/分，整。球瞼結膜に貧血，黄疸なし。

口腔内に異常はみられなかった。上腹部正中に手術瘢痕があり、臍上右側に小児頭大の可動性を有する弾性硬の腫瘍を触知した。

入院時血液検査：CEA，AFP，CA19-9の腫瘍マーカーは正常であり，ほかの血液生化学検査にも異常値は認めなかった。

腹部エコー：11×10cmのほぼ球形の腫瘍を認め，内部はモザイク様であった。周辺臓器との境界は明瞭であった（Fig. 1）。

注腸造影：結腸の壁外からの圧排やポリープなどの

Fig. 1 Ultrasoundgraphy revealed round shaped and irregular echoic pattern.



Fig. 2 Abdominal CT scan showed round and solid tumor.

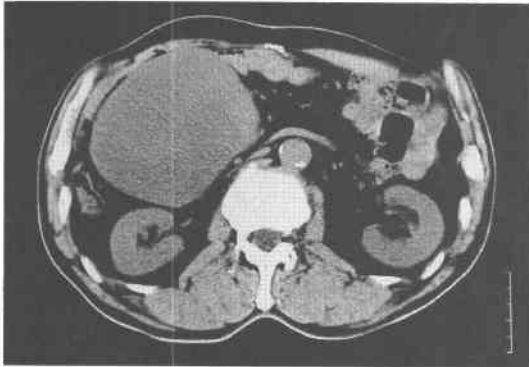
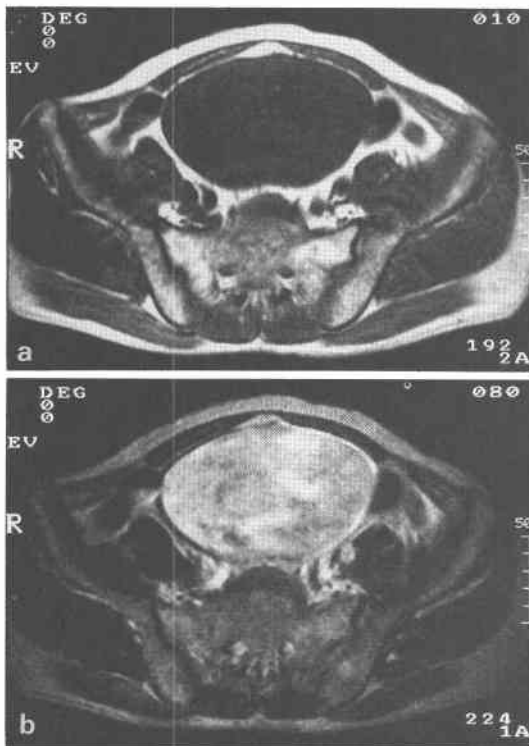


Fig. 3 MRI demonstrating a low intensity mass on T1 weighted images (a) and high intensity mass on T2 weighted images (b).



異常所見はみられなかった。

腎盂造影：両側尿管とも圧排や狭窄所見を認めなかった。

腹部 CT：辺縁にやや高吸収域の部分を知る約10 cm 大で、辺縁の明瞭な球形の充実性の腫瘍像がみら

Fig. 4 Operative findings revealed that the tumor was originated from the mesentery of ileum.

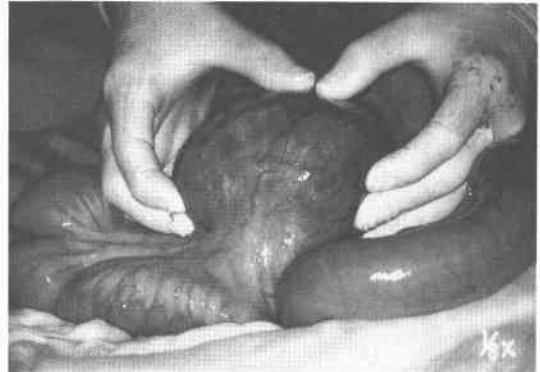


Fig. 5 The cut surface of resected specimen showed a smooth surface, whitish and solid tumor with elastic hard consistency, measuring 11.5×10.5×10.5cm.

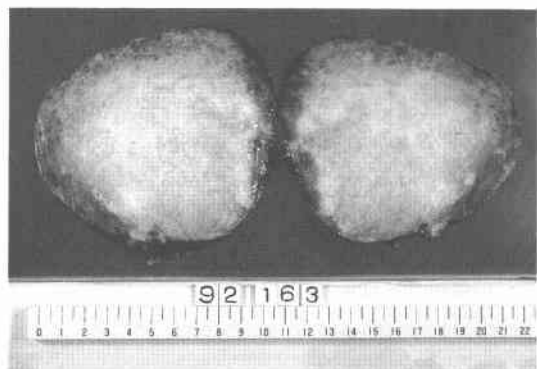
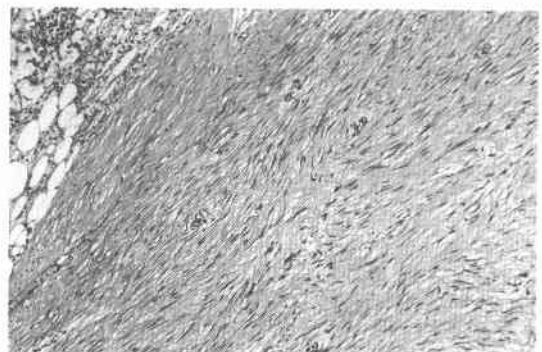


Fig. 6 Microscopic view showed spindle-shaped fibroblasts and their production of the abundant collagen fiber were recognized.



れた (Fig. 2).

腹部 MRI: 第3腰椎から第3仙椎までの高さに内部不均一で境界明瞭な腫瘤像がみられた。内部は T1強調画像では低信号, T2強調画像では高信号であった (Fig. 3a, b).

以上より, 腸間膜腫瘍の診断にて, 1992年5月25日開腹手術を施行した。

手術所見: 腹腔内の癒着は軽度で, 腹水および胃癌再発の所見はみられなかった。境界明瞭で充実性な手拳大の腫瘤が, トライツ靱帯より約110cmの空腸腸間膜より発生していた (Fig. 4)。腫瘍臍側に上腸間膜静脈の本幹と, 上腸間膜動脈からの栄養血管がみられた。全周にわたって腸間膜より剝離し, 腫瘍を全摘出した。なお, 腸管の合併切除は回避できた。

Table 1 Reported cases of intra-abdominal desmoid tumor without polyposis coli in Japan

Author	Year	Age	Sex	Chief Complaints	History of ope	Origin	Tumor removal	Resection of intestine
1. Mori	1960	61	F	Abdominal tumor	unknown	Mesocolon	+	unknown
2. Ishiguro	1966	19	M	Abdominal full sensation	unknown	Mesentery of ileum	+	+
3. Shindoh	1970	20	M	Abdominal full sensation	-	Mesentery of ileum	+	+
4. Okuyama	1974	47	M	Abdominal tumor	unknown	Mesentery of ileum	+	+
5. Ro	1977	80	M	Abdominal tumor	-	Mesentery of ileum	+	+
6. Nishino	1979	33	M	Abdominal full sensation	+	Mesentery of jejunum	+	+
7. Nojiri	1980	33	M	Abdominal full sensation	unknown	Mesentery of ileum	+	+
8. Maeda	1981	35	F	Abdominal tumor	unknown	Mesentery of ileum	+	+
9. Satoh	1981	44	M	Abdominal tumor	-	Mesentery of jejunum	+	+
10. Hayashi	1982	49	F	Abdominal full sensation	+	Mesentery of ileum	+	+
11. Naeki	1983	72	F	Abdominal tumor	-	Mesentery of jejunum	+	+
12. Kondoh	1984	50	M	Abdominal tumor	-	Mesentery of ileum	+	+
13. Akagi	1984	34	M	rt-Hypochondralgia	-	Omentum	+	+
14. Tanaka	1985	64	M	Abdominal pain, Melena	-	Duodenum	+	+
15. Souda	1986	44	M	Abdominal tumor	+	Mesentery of jejunum	+	+
16. Akiyama	1986	32	F	Melena	-	Pelvis	+	-
17. Yoshih	1986	37	M	Abdominal tumor	-	Mesocolon	+	+
18. Takamiya	1987	29	F	Abdominal tumor	-	Mesocolon	+	+
19. Shimizu	1987	32	F	Abdominal tumor	+	Mesentery of ileum	+	+
20. Kanbe	1987	39	M	Abdominal tumor	-	Mesentery of ileum	+	+
21. Hatada	1987	44	M	Abdominal full sensation	+	Mesentery of ileum	+	+
22. Takayama	1987	65	M	Abdominal tumor	+	Mesocolon	unknown	unknown
23. Shiiki	1987	72	F	Abdominal tumor	+	Mesentery of jejunum	+	+
24. Ueyama	1988	20	M	Abdominal tumor	-	Mesentery of ileum	+	+
25. Terayama	1988	69	M	Abdominal tumor	+	inknown	unknown	unknown
26. Kikuhara	1989	56	M	Abdominal tumor	+	Mesentery of ileum	+	+
27. Iga	1989	19	F	Abdominal tumor	-	Reperopitoneum	+	+
28. Nobusawa	1989	51	F	Abdominal tumor	-	Omentum	unknown	unknown
29. Arai	1989	40	F	Abdominal tumor+pain	-	Mesentery of ileum	+	+
30. Katoh	1989	29	M	Abdominal tumor+pain	-	Messentery of ileum	unknown	unknown
31. Miyazaki	1989	69	M	Melena	-	Mesentery of ileum	-	-
32. Watanabe	1990	38	M	Abdominal tumor	-	Mesentery of colon	+	+
33. Kamizumi	1990	61	M	Pelvic tumor	-	Pelvis	+	-
34. Otsuka	1990	44	M	Abdominal tumor	+	Mesentery of ileum	+	+
35. Nabeya	1990	79	F	Abdominal pain+vomit	-	Ileum	+	+
36. Isa	1990	44	F	Abdominal tumor	+	Mesentery of ileum	+	+
37. Hirano	1990	65	F	Abdominal pain	+	Mesentery of ileum	+	+
38. Terashita	1991	50	M	Abdominal tumor	+	Mesentery of ileum	+	+
39. our case	1992	61	M	Abdominal tumor	+	Mesentery of jejunum	+	-

摘出標本：11.5×10.5×10.5cm, 760g大, 境界明瞭な線維性被膜で覆われた球形腫瘍であった。剖面は充実性で乳白色を呈し出血, 壊死はみられなかった(Fig. 5)。

病理組織所見：腫瘍は細い紡錘形の核を有する線維芽細胞が束状に増殖し, 間質は硝子化を伴う膠原線維に富んでいた。悪性所見は認められず, デスモイド腫瘍と診断された(Fig. 6)。

術後経過は良好で第18病日に退院した。術後2年6か月の現在も再発の徴候は認められない。

考 察

デスモイド腫瘍は組織学的には膠原線維の増殖を伴う, 分化した線維芽細胞の浸潤性増殖を示す良性腫瘍であるが, その病因に関してはこれまで染色体異常による先天性説や, 手術やホルモン異常などによる後天性説とが提唱されている³⁾⁻⁵⁾。デスモイド腫瘍に大腸ポリポーシスが合併する頻度は63%⁶⁾と高率であるが, 自験例のようにポリポーシスの合併がなく, 単独で腹腔内に発生した症例はきわめてまれであり, 本邦ではこれまでに38例の報告がなされているにすぎない。そこで大腸ポリポーシスを合併しない腹腔内デスモイド腫瘍について, 本邦報告例に自験例を加えた39例の検討を行った(Table 1)。

性差は男性25例, 女性14例で男性に多く, 年齢分布は19歳~80歳で平均46.9歳であった。主訴は腹部腫瘤が圧倒的に多く26例(66.7%)で, そのほか腹部膨満感, 腹痛などがみられた。

デスモイド腫瘍の発生と手術の既往との関係について, 渡辺ら⁷⁾は, 大腸ポリポーシス合併症例ではデスモイド腫瘍発生したものに手術既往を有するものが88%あったのに対し, 非合併症例では56%と低いことから, 大腸ポリポーシス非合併症例では開腹術がデスモイド腫瘍発生要因となるとは考えにくいとしており, 平野ら⁸⁾も同様な報告をしている。今回行った39例の検討でも, 不明の5例を除くと, 手術既往のあるものが14例(35.9%)で, 既往のないものの20例(51.3%)と比べると比較的低率であり, 開腹術という単独侵襲が腹腔内デスモイド腫瘍の発生要因になりうる可能性は低いものと考えられた。発生部位では小腸間膜が26例(66.7%)と圧倒的に多く, これまでの報告⁷⁾⁻⁹⁾と同様であった。

治療は外科的切除が原則⁹⁾であるが, 手術的摘出の際に, 腫瘍が周囲臓器への浸潤性発育, とくに主要血管を巻き込んでいるため, 摘除不能あるいは腸管合併

切除を余儀なくされる場合が多い。今回の検討においても腫瘍を摘出しかつ腸管合併切除が回避できた例は, 自験例を含めて2例しかなかった。切除範囲と再発率に関しては, 正常組織を含めた十分な範囲を切除した場合の5年以内の再発率は約15%であるが, 腫瘍のみの切除の場合は50%と報告¹⁰⁾されている。また, 組織学的には悪性ではないものの, 再発を繰り返すうちに悪性化した症例¹¹⁾や, 腫瘍による死亡例¹²⁾の報告もある。このような再発例は, 腫瘍が周辺臓器や主要血管との剥離が困難なため, 不完全切除に終わった場合に多いとされている⁹⁾¹²⁾。自験例では上腸間膜動静脈への浸潤はなく, 腸間膜の切除範囲も十分であり, 腫瘍遺残はなく, 完全切除ができたものと判断されたが, 現在, 嚴重に経過観察中である。

補助療法として放射線療法, 化学療法やホルモン療法が試みられているが, 放射線療法はあまり有効ではないとする報告もある¹³⁾。また, デスモイド腫瘍の75%にエストロゲンレセプターが陽性である¹⁴⁾ことから, ホルモン療法が行われ, 腫瘍の縮小効果を認めた報告もある¹⁵⁾。しかし一般に腹腔内デスモイド腫瘍のみの症例の予後は比較的良好とされており¹⁶⁾, 本症例も補助療法を施行していないが, 術後2年6か月再発の徴候を認めていない。

文 献

- 1) Naylor EW, Gardner EJ, Richards RC: Desmoid tumors and mesenteric fibrosis in Gardner's syndrome. Arch Surg 114: 1181-1185, 1979
- 2) 二村 学, 横尾直樹, 岡本亨爾ほか: 結腸全摘後7年目に腹腔内 desmoid を発症した Gardner 症候群の1例. 日消外会誌 27: 806-810, 1994
- 3) Simpson RD, Harrison EG, Mayo CW: Mesenteric fibrosis in familial polyposis. Cancer 17: 426-534, 1964
- 4) Waddell WR, Kirsh WM: Testolactone, sulindac, warfarin and vitamin K1 for unresectable desmoid tumors. Am J Surg 161: 416-421, 1991
- 5) Hayry P, Reitamo JJ, Totterman S et al: The desmoid tumor. II. Am J Clin Pathol 77: 674-680, 1982
- 6) 宇都宮讓二, 岩間毅夫: 消化管ポリポーシス. 日臨 36: 2126-2129, 1978
- 7) 渡辺直樹, 中井 肇, 折田洋二郎ほか: 横行結腸間膜内に発生したデスモイド腫瘍の1例. 日消外会誌 27: 1122-1126, 1994
- 8) 平野達也, 青木康明, 伊藤隆康ほか: 直腸癌術後に発生した腹腔内デスモイド腫瘍の1例. 日消外会誌 26: 2692-2696, 1993

- 9) Kim DH, Goldsmith HS, Quan SH et al: Intraabdominal desmoid tumor. *Cancer* 27: 1041—1045, 1971
- 10) Posner MC, Shiu MH, Newsome JL et al: The desmoid tumor. *Arch Surg* 124: 191—196, 1989
- 11) 上泉 洋, 佐藤直樹, 三澤一仁: 再発を繰り返し悪性化した巨大骨盤内デスマイドの1例. *日臨外医会誌* 51: 1354—1358, 1990
- 12) Allen PB, Lesile HS, Kris MS et al: Intra-abdominal fibromatosis. *Am J Surg Pathol* 14: 335—341, 1990
- 13) McAdam WAF, Goligher JC: The occurrence of desmoids in patients with familial polyposis coli. *Br J Surg* 57: 618—631, 1970
- 14) Reitamo JJ, Hayry P, Nykyri E et al: The desmoid tumor. *Am J Clin Pathol* 151: 230—237, 1986
- 15) Kinzbrunner B, Ritter S, Domingo J et al: Remission of rapidly growing desmoid tumors after tamoxifen therapy. *Cancer* 52: 2201—2204, 1983
- 16) 佐藤幹雄, 三戸康郎, 西村栄彦ほか: 小腸間膜より発生した腹腔内デスマイドの1治験例. *臨外* 36: 1013—1017, 1981

A Case of Report of Intra-abdominal Desmoid Tumor of the Mesenterium without Polyposis Coli

Shinji Osada, Hiromi Tanemura and Hiroo Ohshita
Department of Surgery, Gifu Municipal Hospital

The patient was a 61-year-old man with the chief complaint of abdominal tumor. Three years earlier, in 1989, he had undergone partial resection of the stomach for early gastric cancer. Abdominal ultrasonography, computed tomography and MRI revealed a tumor that had developed from the mesenterium. Laparotomy was performed on May 25, 1992. A tumor was found in the mesenterium of the jejunum approximately 110 cm from Treitz's ligament. The tumor was extirpated without resection of the intestine. The resected elastic hard tumor, measuring 11.5 × 10.5 × 10.5 cm, showed a smooth surface, was whitish and had a solid cut surface. Microscopic view showed spindle-shaped fibroblasts and their production of abundant collagen fibers. The histological diagnosis was intra-abdominal desmoid tumor. There has been no evidence of recurrence as of 2 years and 6 months after surgery. This is a rare case of intra-abdominal desmoid tumor without polyposis coli, only 38 cases have been reported in the Japanese literature. We discussed the clinical findings of this desmoid tumor.

Reprint requests: Shinji Osada Department of Surgery, Gifu Municipal Hospital
JAPAN