

開腹既往と大腸腺腫症を伴わない小腸間膜原発の mesenteric fibromatosis の 1 治験例

名城病院外科, 名古屋大学検査部病理*

世古口 英 土江 健嗣 久納 孝夫
米山 文彦 西本 和生 長坂 徹郎*

Mesenteric fibromatosis (腸間膜線維腫症) の報告はまれである。大腸腺腫症の合併がなく、また開腹術などによる腹部侵襲の既往の認めないものは、極めてまれである。

症例は61歳の男性。主訴、腹部腫瘤。腹部 US, CT, MRI などから、大網もしくは腸間膜由来の腫瘍と診断し、開腹術を施行した。腫瘤は回盲弁より約150cm 口側の回腸腸間膜に存在していた。腫瘤の大きさは75×75×50mm であり、断面は充実性の灰白色を呈していた。病理組織学的には mesenteric fibromatosis と診断された。

患者は術後1年6か月を経た現在、再発を認めていない。

Key words: mesenteric fibromatosis, mesenteric desmoid

はじめに

Mesenteric fibromatosis¹⁾は家族性大腸腺腫症や Gardner 症候群に合併し、また、手術、外傷、妊娠を発症誘因とすることも知られている。今回、われわれはこのような既往歴をもたない mesenteric fibromatosis の 1 例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 61歳, 男性

主訴: 腹部腫瘤

既往歴: 高血圧症にて内服治療中。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成7年12月頃より腹部腫瘤に気づき近医を受診し、精査目的で当院へ紹介となった。

入院時現症: 身長170cm, 体重70kg, 栄養状態良好。眼瞼結膜に貧血なく、眼球結膜に黄疸なし。表在リンパ節の腫脹なし。腹部は平坦かつ軟。下腹部正中に径約7cmの腫瘤を触知。腫瘤は可動性良好で表面は平滑、弾性硬で圧痛を認めなかった。

入院時血液生化学, 尿検査所見: 一般検査, 検尿, 血液生化学検査, 電解質に異常を認めなかった。腫瘍マーカーは AFP, CEA, CA19-9ともに正常範囲内で

あった。

腹部超音波検査所見: 腹腔内に比較的辺縁整で内部エコーのやや不均一な充実性の hypoechoic mass を認めた。内部エコーの一部はやや hyperechoic であった (Fig. 1)。

小腸造影 X 線検査所見および注腸造影 X 線検査所見: 下腹部正中において、小腸が腫瘍周囲へ圧排されており、横行結腸は一部上方に圧排されている所見を認めたが、狭窄、不整などは認めず、また、ポリボージスも認めなかった (Fig. 2)。

腹部 CT 検査所見: 腹部正中、臍より約8cm 下方に筋肉と同様の density で、造影効果の乏しい境界明瞭、類円形の腫瘤像を認めた。CT 値は単純で30.6, 造影で

Fig. 1 Ultrasonography revealed round shaped hypoechoic mass with irregular inner pattern.



<1998年1月14日受理>別刷請求先: 世古口 英
〒460-0001 名古屋市中区三の丸1-3-1 名城病院外科

60.7であった (Fig. 3).

腹部 MRI 検査所見：T1強調像で低信号を，T2強調像で高信号をしめす，辺縁明瞭で内部の不均一な腫瘤像を呈した (Fig. 4).

以上より，腸間膜あるいは大網由来の腫瘍と診断し，

Fig. 2 X-ray examination of small intestine and large intestine showed no stricture but dislocation from the right lower abdomen.

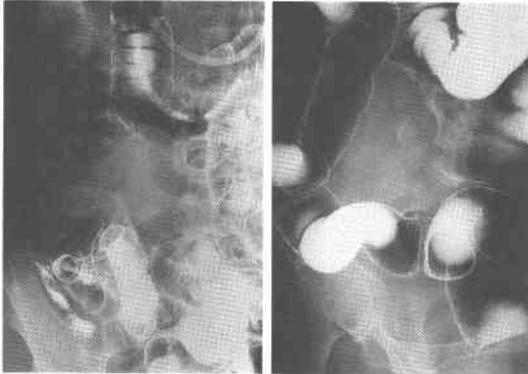
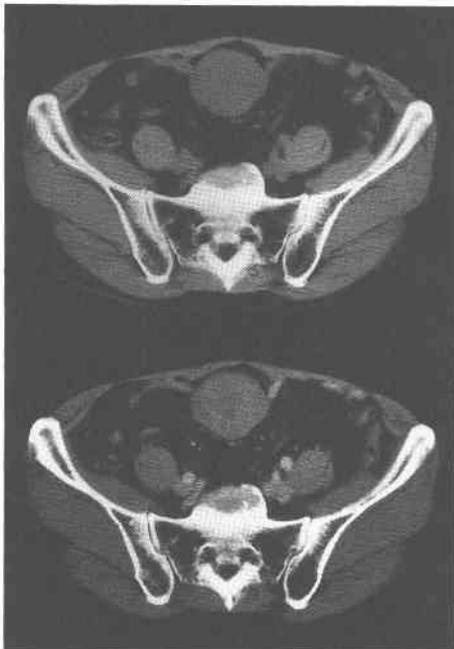


Fig. 3 The mass was isodense with muscle and was enhanced moderately. (a) plane CT (b) enhanced CT

$\frac{a}{b}$



1996年 1月30日，開腹術を施行した。

手術所見：腹部正中切開にて開腹。腫瘤は径約7cmで，回盲弁より約150cmの回腸腸間膜より発生しており，他臓器への浸潤やリンパ節腫脹を認めなかった (Fig. 5)。腫瘤を中心として，腸間膜を含めて回腸を約40cm合併切除し，端々吻合を施行した。

切除標本肉眼所見：腫瘍の大きさは75×75×

Fig. 4 MRI demonstrated a low intensity mass on T1 weighted image (a) and high intensity on T2 weighted image (b).

$\frac{a}{b}$

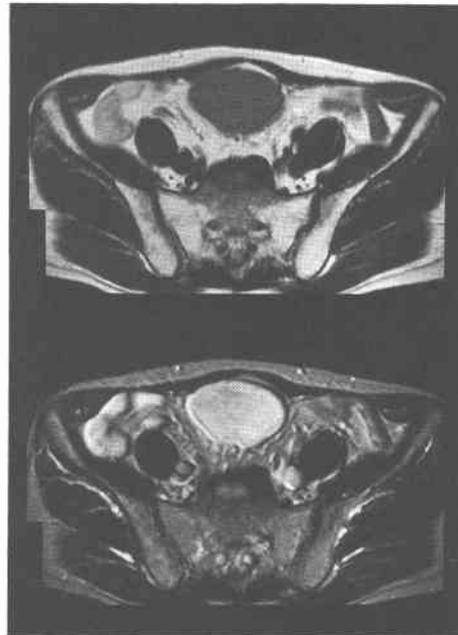
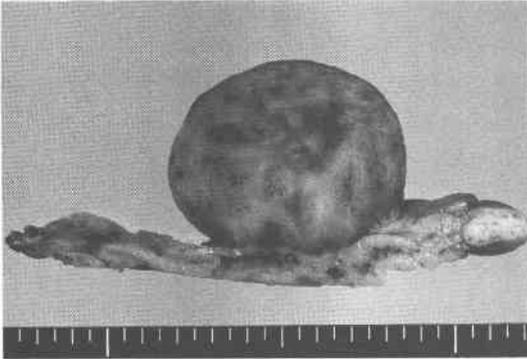


Fig. 5 Operative findings revealed that the tumor was originated from the mesentery of the ileum.



Fig. 6 The cut surface of resected specimen showed gray solid tumor, measuring 75×50mm.



50mm. 表面は平滑で充実性、弾性硬であった。断面は灰白色を呈し、出血、壊死は認めなかった (Fig. 6)。

病理組織検査所見：腫瘍は紡錘形の線維芽細胞から成り、膠原線維を伴っていた。非腫瘍部との境界は比較的明瞭であったが、被膜形成はなく、一部腸間膜側へ浸潤性発育を示す部分も認めた (Fig. 7)。核異型は軽度であり、分裂像は認めなかった。以上より mesenteric fibromatosis と診断された。

術後経過：経過は順調で術後20日目に退院した。術後1年6か月を経た現在再発の兆候は認めていない。

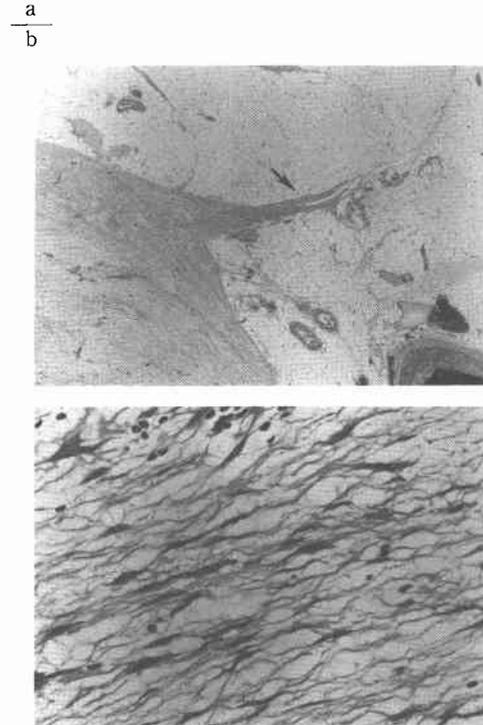
考 察

線維腫症 (fibromatosis) という名称は多種類の良性線維性増殖に対して用いられており、狭義にはデスマイドと同等で、発生部位によって、腹壁、腹壁外、腹腔内に分けられる。腹腔内のできるもののうち、腸間膜にできるものは、腸間膜デスマイド、あるいは mesenteric fibromatosis とも呼ばれている。デスマイドは、①分化した線維芽細胞の増殖、②浸潤性発育形態、③増殖性細胞間に多量の膠原の存在、④細胞学的悪性像や顕著な核分裂像を欠くこと、⑤臨床的に侵襲性で、摘除後しばしば局所再発を繰り返すが、転移を形成することはないことが特徴とされている²⁾。

Mesenteric fibromatosis は線維肉腫との鑑別が問題であり、現在では細胞異型が明らかで1強拡大視野に1個以上あるようなものが線維肉腫とされている³⁾。

本症例においては、腫瘍は紡錘形の線維芽細胞からなり、膠原線維を伴っていた。一部腸間膜側への浸潤性発育が認められたが、核異型はなく、デスマイドとして矛盾しないものであった。

Fig. 7 (a) HE/×4 It was recognized that the tumor was infiltrated into the fatty tissue of the mesenterium. (b) HE/×200 Spindle shaped fibroblast and their production of collagen fiber were recognized.



Mesenteric fibromatosis は大腸腺腫症の合併頻度が高く、発症誘因として開腹術の既往歴のあるものが多いことが知られている。渡辺らによれば、mesenteric fibromatosis に大腸腺腫症を合併したものは28例中17例 (61%) であり、手術既往のある症例は26例中17例 (65%) であった。また、大腸腺腫症合併例では手術既往のあるものは88%であるのに対し、大腸腺腫症非合併例では手術既往のあるものは56%であり、開腹術による侵襲単独では mesenteric fibromatosis の発生要因になりえる可能性が低いとした⁴⁾。Bridge ら⁵⁾ は desmoid の腫瘍細胞において、一部の症例に Y 染色体の完全な欠損や、一部の欠失、転座がみられることや、大腸腺腫症の合併するしないにかかわらず5q 染色体の欠失がみられるものがあることから、これらの染色体異常が desmoid の発生にとって重要な役割を果たしており、手術や外傷、ホルモン異常などの2次的誘因によって腫瘍が発生してくる可能性があり、今後の検討が必要であると考えている。Crohn 病に合併した

例⁶⁾, Hodgkin 病に対する放射線療法施行後発症した例⁷⁾なども最近報告されている。

大腸腺腫症の合併がなく、開腹術の既往もない本症はきわめてまれで、本邦における報告例は、今回検索しえたかぎりでは自験例を含め13例であった (Table 1)。

術前に診断されることはまれであり、診断できた症例は Gardner 症候群を合併しており、そのために類推できたものと考えられた症例である⁴⁾。本症例においても術前には質的診断不能であった。

診断方法として特異的なものはみられないが、檜橋ら¹⁹⁾は desmoid の MRI 像と CT 像の比較を検討しており、MRI 像、とくに T2強調像において、腫瘍は低信号域と高信号域の混在としてみられ、周囲組織、とくに筋肉とは異なる信号を示すため、その浸潤範囲は画像上直接的にみられ、CT より役立つとしている。治療は外科的切除が原則とされている。腫瘍は腸間膜や腸管漿膜に浸潤発育するため、腸管の合併切除を余儀なくされる場合が多い。われわれの場合も同様であった。

保存的療法として、放射線療法、薬物療法が試みられている。放射線療法は悪性化が示唆されている報告があり治療成績も満足いく結果は得られていない²⁰⁾²¹⁾。薬物療法においては complete response を得ている報告もあるが満足のいく結果は得られていない²²⁾。

大腸腺腫症を合併しない mesenteric fibromatosis の予後は比較的良好で、本邦においては切除後に再発

を認めた報告はなかった。佐藤ら¹⁰⁾は海外における集計において、19例中3例のみに再発がみられたとしている。再発例に対する再切除の成績は注目に値し、数回の再切除後に長期生存をえている症例も散見され、積極的に試みるべき治療法と思われた²¹⁾²³⁾。

文 献

- 1) Yannopoulos K, Stout AP: Primary solid tumors of mesentery. *Cancer* 16: 914-927, 1963
- 2) Ackerman LV: Fibromatosis. Edited by Rosai J. *Surgical Pathology*. vol 2. Sixth edition. St. Louis, Missouri. 1981, p1415-1419
- 3) 遠城寺宗知: 軟部腫瘍. 石川栄世, 牛島 宥, 遠城寺宗知 編. 外科病理学. 第2版. 文光堂, 東京, 1988, p926-931
- 4) 渡辺直樹, 中井 肇, 折田洋二郎ほか: 横行結腸間膜に発生したデスマイド腫瘍の1例. *日消外誌* 27: 1122-1126, 1994
- 5) Bridge JA, Chardrika S, Barbara M et al: Clonal chromosomal abnormalities in desmoid tumors. *Cancer* 69: 430-436, 1992
- 6) DiGiacomo JC, Lazenby AJ, Salloum LJ: Mesenteric fibromatosis with Crohn's disease. *Am J Gastroenterol* 89: 1103-1105, 1994
- 7) Bar-Maor, Shabshin U: Mesenteric fibromatosis. *J Pediatr Surg* 28: 1618-1619, 1993
- 8) 進藤勝久, 安富正幸, 河原 勉ほか: 巨大な腸間膜腫瘍の1例. *外科治療* 22: 591-594, 1970
- 9) 西尾碩人, 亀谷正明, 清水 勝ほか: 腸間膜より発生したと思われる線維腫の1例. *内科* 44: 713-716, 1979
- 10) 佐藤幹雄, 三戸康郎, 西村栄彦ほか: 小腸間膜より

Table 1 Case reports of mesenteric fibromatosis without polyplosis coli or surgical intervention in Japan

first author	year	age & sex	site	size (cm)	recurrence
Shindo ⁸⁾	1970	20M	mesentery of ileum	21×20×10.5	-
Nishio ⁹⁾	1979	33M	mesentery of ileum	24×17×9	-
Sato ¹⁰⁾	1981	44M	mesentery of ileum	7×7×6	-
Yoshii ¹¹⁾	1986	37M	mesentery of tr. colon	10×8	-
Kondo ¹²⁾	1986	50M	mesentery of ileum	7×7×6	-
Shiigi ¹³⁾	1987	72F	mesentery of jejunum	7×5×2.5	-
Ueyama ¹⁴⁾	1988	20M	mesentery of sm. int.	30×25×12	-
Tanimura ¹⁵⁾	1988	18F	mesentery of jejunum	12×10	-
Miyazaki ¹⁶⁾	1990	69M	mesentery of sm. int.	7×5	unresected
Nakajima ¹⁷⁾	1991	31M	mesentery of ileum	21×17×10	-
Watanabe ⁴⁾	1994	38M	mesentery of tr. colon	7.5×7×5	-
Yoshizumi ¹⁸⁾	1995	54M	mesentery of ileum	4×4×4	-
Our case		61M	mesentery of ileum	7.5×7.5×5	-

sm. int.: small intestine tr. colon: transverse colon

- 発生した腹腔内デスマイドの 1 治験例. 臨外 36:1013-1017, 1981
- 11) 吉井修二, 秋元 博, 原 伸一ほか: 横行結腸間膜より発生した mesenteric fibromatosis の 1 例. 日消外会誌 19:997-1000, 1986
- 12) 近藤公男, 鈴木伸男, 斉藤 博ほか: 当科で経験した腸間膜腫瘤の 2 例—Desmoid と黄色肉芽腫性腸間膜炎—. 新潟医学会誌 100:167, 1986
- 13) 椎木滋雄, 桑田康典, 柏原瑩爾ほか: 小腸間膜より発生した腹腔内デスマイド腫瘍の 1 例. 日臨外会誌 48:1704-1708, 1987
- 14) 上山 聡, 小林征二, 毛利 宰ほか: 巨大腹部腫瘤を形成し完全摘出が可能であった mesenteric fibromatosis の 1 例. 広島医 41:1483-1486, 1988
- 15) 谷村 晃, 川元博之, 杉原 誠ほか: 腸間膜線維腫症 mesenteric fibromatosis の 1 例. 日臨細胞会誌 27:1007-1010, 1988
- 16) 宮崎 悦, 幸田久平, 中澤 修ほか: 大腸静脈瘤破裂による大量下血を呈した腸間膜線維腫症の 1 例. 旭川赤十字病医誌 4:149-154, 1990
- 17) 中嶋 伸, 斉藤 宏, 河手典彦ほか: Spontaneous Mesenteric Fibromatosis の 1 例. 日外会誌 92:93-96, 1991
- 18) 吉栖一生, 長畑洋司, 土田 忍ほか: 小腸間膜より発生した Spontaneous Mesenteric Fibromatosis の 1 例. 日外会誌 96:314-317, 1995
- 19) 櫛橋民夫, 宗近宏次, 大槻紀子ほか: デスマイド腫瘍の MRI imaging と CT の比較. 日医放線会誌 53:526-534, 1993
- 20) Soule EH, Scarlon PW: Fibrosarcoma arising in extra-abdominal desmoid tumor. Report of case. Mayo Clin Proc 37:443-451, 1962
- 21) Kim DH, Goldsmith HS, Quan SH et al: Intra-abdominal desmoid tumor. Cancer 27:1041-1045, 1971
- 22) Shreyakumar R, Patel MD, Harry L et al: Combination chemotherapy in adult desmoid tumor. Cancer 72:3244-3247, 1993
- 23) Miguel A, Bordriguez-Bigas, Martin C et al: Desmoid tumors in patients with adenomatous polyposis. Cancer 74:1270-1274, 1994

A Case Report of Mesenteric Fibromatosis occurred from the Mesentery of the Small Intestine without Surgical Intervention or Polyposis Coli

Ei Sekoguchi, Kenji Tsuchie, Takao Kunou, Humihiko Yoneyama,
Kazuo Nishimoto and Tetsuro Nagasaka*

Department of Surgery, Meijo Hospital

*Department of Laboratory Medicine, Nagoya University, School of Medicine

Case report of mesenteric fibromatosis is rare. Especially it without polyposis coli or surgical intervention is very rare. 61-year-old man was admitted to the hospital complained of abdominal tumor. Abdominal ultrasonography, computed tomography, and magnetic resonance imaging revealed a tumor that may have developed from the large omentum or mesentery. He underwent laparotomy. A tumor was found in the mesentery of the ileum approximately 150 cm from the ileocecal valve. The tumor, measuring 75 × 75 × 50 mm in size had a solid and gray cut surface. The histological diagnosis was mesenteric fibromatosis. He is alive 1 and a half year after the surgery and has no sign of recurrence.

Reprint requests: Ei Sekoguchi Department of Surgery, Meijo Hospital
1-3-1 Sannomaru, Naka-ku, Nagoya, 460-0001 JAPAN