

大腸に発生した多発性顆粒細胞腫の1例

名古屋市立大学第1外科

竹山 廣光 大原 永子 赤毛 義実 田中 守嗣
福井 拓治 早川 哲史 毛利 紀章 山本 稔
佐藤 幹則 真辺 忠夫

症例は46歳の男性。腹痛を主訴に来院。注腸 X 線, 内視鏡検査にて盲腸底部に大小不同の結節集簇性病変と, 回盲弁直上およびその2cm 肛門側の上行結腸, 直腸にそれぞれ2mm, 10mm, 5mm の粘膜下腫瘍 (SMT) を認めた。直腸の SMT に対してはポリペクトミーを施行し, 盲腸の結節集簇性病変と上行結腸の2か所の SMT に対して回盲部切除を施行した。3個の SMT はいずれも粘膜下層に存在し, 好酸性顆粒をもつ多型細胞が胞巣状に増生しており顆粒細胞腫と診断された。免疫組織学的染色では, S 100蛋白陽性, NSE (neuron-specific-enolase) 陽性, desmin 陰性であり神経原性と考えられた。欧米では悪性例も報告されており, 確実な切除が重要である。本症例においては7年を経過した現在, 再発を認めていない。大腸における多発性の顆粒細胞腫は過去2例を認めるのみで極めてまれである。

はじめに

顆粒細胞腫 (granular cell tumor: 以下, GCT) は, 一般的に Schwann 細胞由来と考えられている良性腫瘍で皮膚, 皮下, 口腔, 舌, 乳房に好発する¹⁾。消化管では, 粘膜下腫瘍として発生し, 本邦においては食道発症例の報告は散見されるが, 大腸発症例の報告はいまだ少ない。特に, 多発した大腸顆粒細胞腫は極めてまれで過去2例の報告があるにすぎない。今回, われわれは上行結腸に2箇所, 直腸に1箇所, 計3箇所に発生した多発性の大腸顆粒細胞腫を経験したので, 単発例を含めた本邦報告例44例の集計とともに報告する。

症 例

症例: 46歳, 男性

主訴: 腹痛

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 腹痛を主訴に近医受診し精査を受け, 上部消化管内視鏡検査にて胃体部に良性潰瘍を認めた。注腸造影 X 線検査, 大腸内視鏡検査にて, 盲腸底部に結節集簇性病変, 上行結腸および直腸に粘膜下腫瘍 (SMT) を認めたため当科へ紹介された。

入院時現症: 身長165cm, 体重55kg。結膜に貧血, 黄疸はなし。表在リンパ節腫大なし。胸部症状なし。腹部は平坦・軟で腹痛は消失しており全身状態は良好であった。その他特記事項なし。

入院時検査所見: 便潜血反応陰性。腫瘍マーカーを含め血液, 生化学検査で異常を認めなかった。

注腸造影 X 線検査: 直腸上部に5mm (Fig. 1A), 回盲弁より2cm 肛門側の上行結腸に10mm (Fig. 1B) の立ち上がりなだらかで表面平滑な粘膜下腫瘍様病変を認めた。他に盲腸底部に18mm の結節集簇性病変を認めた。

大腸内視鏡検査: 回盲弁直上に2mm大, その2cm 肛門側の上行結腸に10mm大 (Fig. 2A), 直腸に5mm大 (Fig. 2B), 正常粘膜で覆われた黄白調の半球形腫瘍を認めた。

治療経過: 直腸の腫瘍に対し, strip biopsy を施行した。腫瘍は硬くスネアで絞断するに通常より時間を要し, 遺残が疑われたが病理検査では完全に切除されていた。盲腸底部の立ち上がり明瞭な大小不同の結節集簇性病変に対し, ポリペクトミーを施行したが遺残が疑われ, 回盲部付近に残りの粘膜下病変2個があることから回盲部切除を施行した。

切除標本肉眼所見: 盲腸底部の病変には軟らかいポリープと癒痕織を認めた。上行結腸の病変は内視鏡検査所見と一致し, 2mm, 10mm 大の正常粘膜で覆われ

<2000年2月23日受理> 別刷請求先: 竹山 廣光
〒467 8601 名古屋市瑞穂区瑞穂町川澄1 名古屋市立大学第1外科

Fig. 1 Barium enema X ray disclosed smooth surface polyp in the rectum (A) and ascending colon (B)

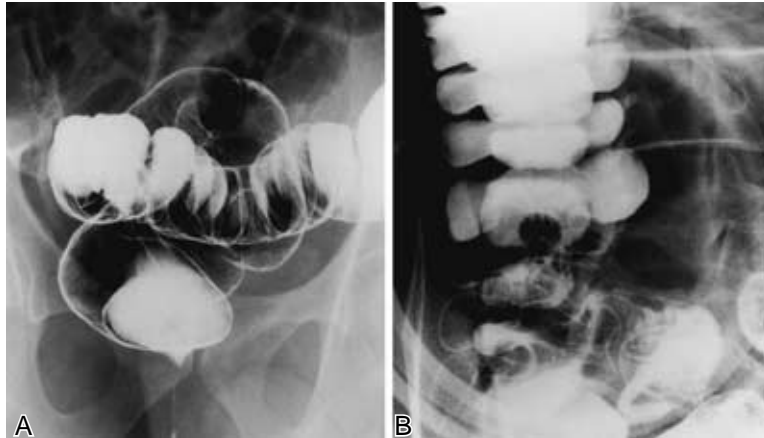
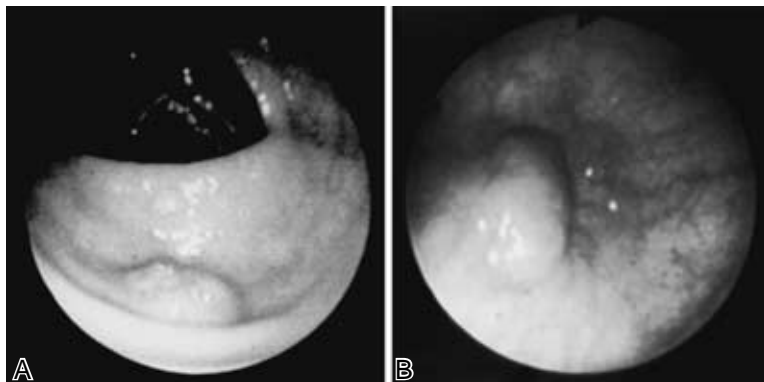


Fig. 2 Colonoscopy revealed a yellowish submucosal tumor (A), and a large polyp in the ascending colon (B)



た半球形粘膜下腫瘍(Fig. 3A), 断面は境界明瞭な球形, 白色の腫瘍であった。

病理組織学的所見: 盲腸底部の腫瘍は腺腫であった。SMTの3病変は共通しており, 粘膜上皮に著変を認めず粘膜下層に腫瘍組織が存在していた。腫瘍細胞は大型多形細胞で, 異型性に乏しい小型円形核を有し, 細胞質には微細な好酸性顆粒が目立ち(Fig. 3B) 核分裂像は認めなかった。好酸性顆粒はPAS陽性でジアスターゼ処理抵抗性であった。免疫組織学的検査では, S 100蛋白陽性, NSE(neuron-specific-enolase)陽性, desmin陰性であった。以上の所見より大腸に多発した顆粒細胞腫と診断した。

術後経過: 術後経過は良好で, 術後7年経過した現在, 再発・転移を認めていない。

考 察

顆粒細胞腫は1926年 Abrikosoff²⁾が食道の筋原性の良性腫瘍として顆粒細胞性筋芽細胞腫(granular cell myoblastoma)を最初に報告した。それ以来, 長らくこの名称で呼ばれていたが, 間葉系細胞由来説や神経原性説などが報告され発生源が不明であることから, 今日ではWHO分類の顆粒細胞腫(granular cell tumor)の名称に統一されている。

発生部位は極めて多彩であり, 白倉ら³⁾の報告によると, 最も頻度の高いのは全身さまざまな場所の皮膚か

Table 1 Cases of granular cell tumors of colon in Japan

Author	Year	Age	Sex	Symptom	Location	Size	S-100	NSE	Therapy	Reference
Yamada	1980	46	M	abdominal pain	C	little finger tip size	N.S.	N.S.	operation	Jpn J Gastroenterol 77
Shimamoto	1985	63	M	incomplete evacuation	T	11x10x6	+	+	polypectomy	Hiroshima I 40
Koike	1985	53	M	N.S.	T	8x6x6	N.S.	N.S.	polypectomy	Prog Dig Endosc 27
Mizuno	1987	48	M	general fatigue	A	9	+	N.S.	polypectomy	Jpn J Gastroenterol 84
Kawaura	1987	48	M	anorexia	A	9	+	N.S.	polypectomy	Gastroenterol Jpn 22
Takeshige	1988	26	F	lower abdominal pain	A	7x6	N.S.	N.S.	polypectomy	Jpn J Coloproctol 41
Mita	1988	41	M	diarrhea	A	30x20	+	N.S.	operation	Gastroenterol Endosc 30
Hirano	1988	10	F	hematochezia	D	25x25x25	N.S.	N.S.	operation	Toho I Ka 34
Takeda	1989	44	M	N.S.	S	N.S.	+	N.S.	polypectomy	Jpn J Coloproctol 42
Takeda	1989	47	M	N.S.	R	N.S.	+	N.S.	polypectomy	Byoin Byori 8
Nakata	1990	37	F	abdominal disorder	A	5	+	+	polypectomy	Byoin Byori 8
Natsuda	1990	40	M	lower abdominal pain	A	5~10	N.S.	N.S.	operation	Miyazaki I Ka 14
Akusawa	1991	43	M	hematochezia	R	15x11x9	+	+	operation	I to Cho 26
Katada	1991	39	M	diarrhea	C	6x6x5	+	+	operation	J Gastroenterol Surg 24
Toshimori	1992	50	M	abdominal disorder	T	6x4x3	+	+	polypectomy	Gastroenterol Endosc 34
Ito	1993	71	F	abnormal defecation	S	8x8	+	N.S.	polypectomy	I to Cho 29
Sugimoto	1993	66	F	N.S.	D	7x7x6	+	+	polypectomy	Jpn J Gastroenterol 90
Okubo	1993	45	M	hematochezia	C	N.S.	+	N.S.	polypectomy	Jpn J Gastroenterol 90
Nagasaki	1993	43	M	constipation	A	11x10x10	+	N.S.	polypectomy	Jpn J Coloproctol 47
Akagi	1994	42	M	N.S.	T	7x6x5	+	+	polypectomy	Hiroshima I 48
Yamada	1994	54	M	abdominal pain	T	15x10	+	+	polypectomy	I to Cho 29
Mihara	1994	53	M	general fatigue	C	5x5x4	+	+	polypectomy	Hiroshima I 48
Yatsumata	1994	48	M	N.S.	S	7	+	N.S.	polypectomy	Endosc Forum Dig Dis 10
Kobayashi	1994	60	M	abdominal pain	C	13	+	+	polypectomy	Prog Dig Endosc 44
Okina	1994	48	M	abdominal disorder	C	7	+	+	polypectomy	Gastroenterol Endosc 36
Utsunomiya	1994	52	M	N.S.	A	5	+	N.S.	polypectomy	Gastroenterol Endosc 36
Shimura	1994	43	M	constipation	A	N.S.	N.S.	N.S.	polypectomy	Gastroenterol Endosc 36
Yamada	1995	62	M	diarrhea	A	5x3x5	+	+	polypectomy	Internal Med 34
Kataoka	1995	44	F	N.S.	R	3x3	+	+	polypectomy	Rin Syo Nai 10
Tanishima	1996	48	F	N.S.	T	10x8x5	+	+	polypectomy	Prog Dig Endosc 48
Ono	1996	59	M	abdominal pain	C	7	+	N.S.	polypectomy	Gastroenterol Endosc 38
Ono	1996	64	M	N.S.	C	2.5	+	N.S.	polypectomy	Gastroenterol Endosc 38
Kawamura	1996	37	M	N.S.	D	8	+	+	polypectomy	Gihu Shiminbyo Nempo 16
Yamada	1996	58	F	lower abdominal pain	T	8	+	N.S.	polypectomy	Minami Osaka I 44
Urano	1996	45	M	abdominal pain	C,A	7x7,8x7	+	+	polypectomy	Gastroenterol Endosc 38
Takeshima	1996	51	F	lower abdominal pain	C	12x12x10	+	N.S.	polypectomy	Dig Endosc 8
Takeshima	1996	46	M	lower abdominal pain	C	4x4x2	+	N.S.	polypectomy	Dig Endosc 8
Kaigi	1996	43	F	N.S.	C	7x6	+	N.S.	polypectomy	Endosc Forum Dig Dis 12
Sasahara	1997	48	M	abdominal distention	C	11x11	N.S.	N.S.	polypectomy	Gastroenterol Endosc 39
Iwamoto	1997	61	F	N.S.	C	4x4	+	+	polypectomy	Sho Naishikyō 10
Hamajima	1997	53	M	N.S.	C	20x14	+	N.S.	polypectomy	Jpn J Gastroenterol 94
Munakata	1998	48	M	N.S.	C	7	+	+	polypectomy	Gastroenterol Endosc 40
Ryo	1998	49	M	N.S.	A	12x6x6	+	+	polypectomy	Prog Dig Endosc 53
Our case	1999	46	M	abdominal pain	A	2,10	+	+	operation	
					R	5	+	+	polypectomy	

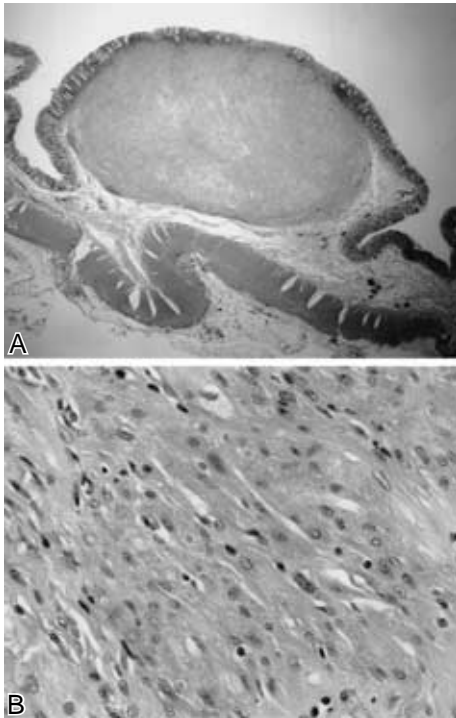
C : Cecum, A : Ascending colon, T : Transverse colon, D : Descending colon, S : Sigmoid colon, R : Rectum.
NS : not stated.

らの発生であり、2番目には舌で、両者合わせて全体の約50%を占める。その他に食道、肺、気管支、眼窩、筋肉、乳房、口腔などに発生する。消化管における報告例は食道においては年々増加しているが、大腸ではまれである。大腸の顆粒細胞腫は1980年1月より1999

年3月までの期間で、検索しえた範囲内では43例報告があるにすぎず、これらのうち多発症例を2例認めるのみであった^{4,5)}。自験例を含めた44例について検討した (Table 1)。

顆粒細胞腫全体での報告では女性が男性の1.6倍と

Fig. 3 Low power magnified view of the tumor showed a well demarcated tumor in the submucosa ($\times 10 \times$ A) High-power magnified of the specimen stained with H-E revealed that the tumor was composed of oval to spindle-shaped cells with eosinophilic granules in the cytoplasm ($\times 400 \times$ B)



多いが、大腸においては男女比は3:1で男性が75%を占め、食道と同様に大腸でも男性に多く、消化管系と他部位とは性差が異なり興味のあるところである。年齢は10歳から71歳まで、平均年齢は 48.2 ± 10.5 歳で40歳代に多い。部位の明らかな47病変のうちわけは、盲腸16病変、上行結腸14病変、横行結腸7病変、下行結腸3病変、S状結腸3病変、直腸4病変であり、横行結腸を含めた右側結腸に78.7%発生していた。大きさの明らかな44病変を検討すると、最小2mmから最大30mmまで、平均 9.1 ± 5.5 mmで比較的小さかった。

本邦における大腸の顆粒細胞腫においては悪性例の報告はみられないが、食道においては散見され⁶⁾⁻⁸⁾、欧米では大腸においても悪性例が報告されており⁹⁾、つねに念頭におく必要がある。また、顆粒細胞腫は本症例のように腺腫や悪性腫瘍との合併も報告されており¹⁰⁾、注意を要する。治療と診断を兼ねた確実な腫瘍

摘出が重要であり、良性であればそれ以上の初期治療は必要でないが、組織学的に良性であっても悪性の経過をとるものもあり経過観察は必要である。44例のうち37例はポリペクトミーが施行されており、すべて20mm以下の病変であった。Madiedoら¹¹⁾によれば20mm以下では内視鏡的切除で十分としており、大多数の症例は内視鏡的に治療できる。外科的切除された7例の内訳は、多発例の2例、20mmを超えた2例、そして内視鏡的切除が困難であった3例である。本症例は上行結腸の2病変については、併存していた盲腸底部の結節集簇性病変がポリペクトミー困難であったため回盲部切除を選択したが、SMTの3病変だけであれば内視鏡的切除が可能であったと考えられ、多発例がすべて外科的切除の対象ではないと思われる。免疫組織学的検査のうち、S 100蛋白の検討がされた38症例では本症例を含め全症例において陽性であった。さらに、本症例ではNSE陽性、desmin陰性であり、神経原性説を支持する結果であった。

文 献

- 1) 片田正一, 小杉光世, 荒川龍夫: 顆粒細胞腫. 別冊日臨 領域別症候群6. 日本臨床社, 大阪, 1994, p 131-133
- 2) Abrikossoff A: Uber Myoma ausgehend von der quergesteriften willkurlichen Muskulatur. Vichows Arch [A] 260: 215-233, 1926
- 3) 白倉規子, 富澤尊儀, 平吹朋子ほか: Granular cell tumorの1例. 本邦報告例199例の統計的観察. 皮の臨 29: 1261-1273, 1987
- 4) 夏田康則, 宮永家昌, 浅田裕士朗: 大腸に発生した多発性顆粒細胞腫の1手術例. 宮崎医会誌 14: 308, 1990
- 5) 浦野 薫, 長嶋厚樹, 島田 介ほか: 内視鏡的ポリペクトミーを施行した盲腸, 上行結腸多発顆粒細胞腫の1例. Gastroenterol Endosc 38: 1968-1971, 1996
- 6) 佐々木哲二, 青木春夫, 笠原正男ほか: 組織学的に悪性所見を呈した食道 Granular Cell Tumorの1例. 臨外 36: 1645-1649, 1981
- 7) 大森高明, 田部井亮: 食道悪性顆粒細胞腫の1例. 日病理会誌 75: 357, 1986
- 8) 岩瀬弘明, 森瀬公友, 堀内 洋ほか: 組織学的に悪性所見を呈した食道顆粒細胞腫の1例. 胃と腸 26: 661-668, 1991
- 9) Hunter DT Jr, Dewar JP: Malignant granular cell myoblastoma: report of a case and review of the literature. Am Surg 26: 554-559, 1960
- 10) Yamaguchi K, Maeda S, Kitamura K: Granular cell tumor of the stomach coincident with two

early gastric carcinoma. Am J Gastroenterol 84 :
656-659, 1989
11) Madiedo G, Komorowski RA, Dhar GJ : Granular

cell tumor (myoblastoma) of the large intestine
removed by colonoscopy. Gastrointest Endosc
26 : 108, 1980

Multiple Granular Cell Tumors of the Colon

Hiromitsu Takeyama, Eiko Ohara, Yoshimi Akamo, Moritsugu Tanaka,
Takuji Fukui, Tetsushi Hayakawa, Noriaki Mohri, Minoru Yamamoto,
Mikinori Sato and Tadao Manabe
First Department of Surgery, Nagoya City University Medical School

The case of a 46-year-old man with multiple granular cell tumors of the colon is reported. The patient was admitted to our hospital with the chief complaint of abdominal pain. Barium enema and colono-fiberscopic examination revealed 3 submucosal tumors (SMT) 2-mm and 5-mm SMTs in the ascending colon and a 5-mm SMT in the rectum, with a large polyp in the cecum. The SMT in the rectum was removed by polypectomy, the polyp and the two SMTs in the ascending colon were resected by ileocecal resection. Histologically, the polyp showed adenoma. The three SMTs had the same histological features, composed of closely packed polygonal cells containing delicate acidophilic granules, and positive for S-100 and NSE (neuron-specific-enolase) and negative for dementin. The diagnosis of granular cell tumor was made. This is the third case report in Japan of multiple granular cell tumors of the colon.

Key words : multiple granular cell tumors, colon, S-100 protein

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 750-754, 2000]

Reprint requests : Hiromitsu Takeyama First Department of Surgery, Nagoya City University Medical School
1 Kawasumi, Mizuho-cho, Mizuho-ku, Nagoya, 467-8601 JAPAN
