

横行結腸間膜に発生した intra-abdominal desmoid の 1 例

福井医科大学第 1 外科

村上 真 前田 浩幸 広野 靖夫 五井 孝憲
 飯田 敦 木村 俊久 竹内 一雄 片山 寛次
 廣瀬 和郎 山口 明夫

結腸間膜に sporadic な発症を来した intra-abdominal desmoid を 1 例経験したので報告する。症例は、52 歳の女性。43 歳時に子宮筋腫の手術歴あり。2001 年 9 月より、右下腹部痛が出現し近医を受診した。腹部 CT 検査により腹腔内に 5 × 4cm の腫瘤を指摘され、当科紹介入院となった。注腸造影 X 線検査で横行結腸が壁外より圧排を受けていたが、粘膜面に異常所見は認めなかった。CT、MRI、血管造影検査から腸間膜腫瘍もしくは Schloffer's tumor を考え、開腹術を施行した。開腹所見で腫瘍は横行結腸間膜に存在した。境界不明瞭で上行結腸と横行結腸への浸潤が疑われたため、右半結腸切除術を施行した。病理組織学的所見より、腫瘍は intra-abdominal desmoid と診断され、横行結腸筋層への浸潤が認められた。

はじめに

Desmoid は狭義の線維腫症で、通常骨格筋をおかし、筋腱膜性線維腫症とも言われている。腹壁 (abdominal)、腹壁外 (extra-abdominal)、腹腔内 (intra-abdominal) に発生するものに大別され、腹壁に発生するものが最も多いとされる¹⁾。

今回、我々は結腸間膜に発生した intra-abdominal desmoid を 1 例経験したので若干の文献的考察を含め報告する。

症 例

症例：52 歳，女性

主訴：右下腹部痛

家族歴：特記事項なし。

既往歴：43 歳時，子宮筋腫にて子宮全摘術

現病歴：2001 年 9 月下旬より右下腹部痛が出現し近医を受診した。虫垂炎の疑いで抗生剤を投与されたが改善せず、腹部 CT を施行された。その結果、腹腔内に腫瘤を指摘され 10 月 16 日当科紹介入院となった。

入院時現症：身長 162.0cm、体重 59.6kg。眼結膜に貧血、黄疸を認めなかった。右腹部に軽度の圧

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	3,400 /mm ³	GOT	26 IU/l
RBC	4.09 × 10 ⁴ /mm ³	GPT	19 IU/l
Hb	11.5 g/dl	ALP	156 IU/l
Ht	36.3 %	LDH	270 IU/l
Plt	14.0 × 10 ⁴ /mm ³	γ GTP	33 IU/l
Na	138 mEq/l	T-Bil	0.4 mg/dl
K	4.2 mEq/l	TP	7.8 g/dl
Cl	100 mEq/l	CRP	2.76 mg/dl
Ca	4.8 mEq/l	Tumor Marker	
BUN	17 mg/dl	CEA	0.7 ng/ml
Crea	0.8 mg/dl	CA19-9	5> U/ml

痛を伴う可動性に乏しい腫瘤を触れた。

入院時血液検査：CRP が 2.76mg/dl と軽度上昇している以外、血液生化学検査で異常を認めなかった。腫瘍マーカーも正常範囲内であった (Table 1)。

注腸造影 X 線検査：横行結腸肝彎曲側に壁外からの圧排所見を認めたが、大腸粘膜に異常所見は認めなかった (Fig. 1)。

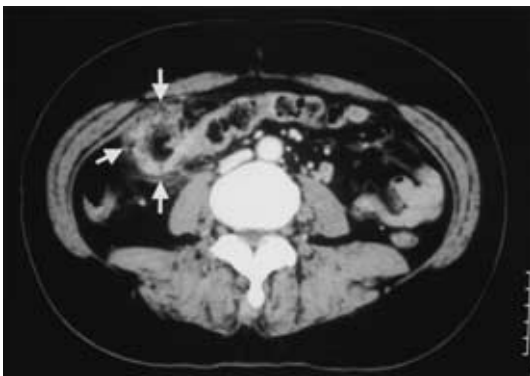
腹部 CT 検査：横行結腸右側に接して 5 × 4cm の腫瘤性病変を認め、同部位の結腸壁は肥厚していた。腫瘍は境界不明瞭で、周辺組織への炎症もしくは浸潤を疑う fat density の上昇を伴って

< 2002 年 12 月 18 日受理 > 別刷請求先：村上 真
 〒910 1193 福井県吉田郡松岡町下合月 23 3 福井
 医科大学第 1 外科

Fig. 1 Barium enema. Transverse colon was slightly pushed from the outside of colonic wall (arrow)



Fig. 2 Abdominal enhanced CT showed a round tumor with unclear border close to transverse colon (arrow) Fat density area existed within the tumor.

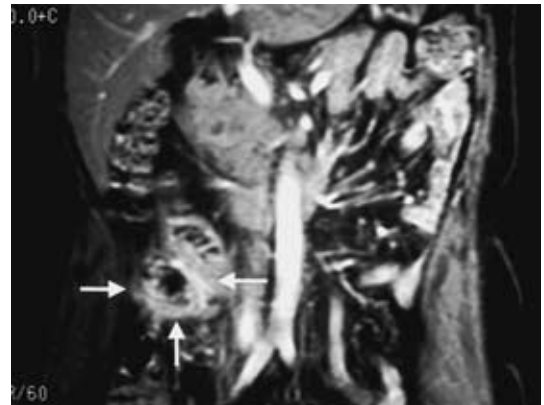


た。中心部に脂肪と思われる low density area を認め、腸間膜もしくは大網原発の腫瘍が疑われた。肝転移、リンパ節腫大は認めなかった (Fig. 2)。

腹部 MRI 検査：CT と同部位に境界不鮮明、不整形の腫瘍を認めた。周囲への浸潤が強く脂肪組織も存在し、炎症性の肉芽腫病変も疑われた (Fig. 3)。

腹部血管造影：腹腔動脈造影で腫瘍は右胃大網

Fig. 3 MRI study. The tumor existed in the mesocolon transversum and severely infiltrated surrounding fat tissue.



動脈の大網枝から主に血流を受けていたが、上腸間膜動脈造影でも中結腸動脈の末梢にわずかな濃染像が認められた (Fig. 4)。

以上より、結腸間膜腫瘍もしくは Schloffer's tumor を疑い手術を施行した。

手術所見：腫瘍は横行結腸間膜に存在し、横行結腸壁に浸潤していた。上行結腸への浸潤も疑われ、悪性疾患も否定できず、結腸右半切除術と2群リンパ節郭清を施行した。

摘出標本：横行結腸間膜に被膜を有さない、55×46×42mm の硬い充実性腫瘍を認めた。粘膜面への露出は認めなかった。腫瘍の内部は、脂肪組織と白色の充実性組織が混在していた (Fig. 5)。

病理組織標本：Hematoxyline-Eosine 染色では、腫瘍は細胞異型を認めない均一な線維芽細胞の浸潤性増殖と豊富な膠原線維より構成されており、desmoid と診断された。リンパ節転移は認めなかった (Fig. 6)。

術後経過：術後2週間で軽快退院となり、10か月経過した現在再発は認めていない。

考 察

Desmoid tumor は発生部位により腹壁 desmoid、腹壁外 desmoid、腹腔内 desmoid に分けられる。発生部位別に比較すると、腹壁 desmoid は26～40歳の女性、特に経産婦に多く、性ホルモン (estrogen) や創瘢痕との関係が示唆されてい

Fig. 4 Angiographic findings revealed omental branches of the right gastro-epiploic artery to feed the tumor (A) and it showed tumor stain (B) The tumor also had received a few feeding arteries from a branch of the middle colonic artery. These arteries showed slight tumor stain (C, arrow)

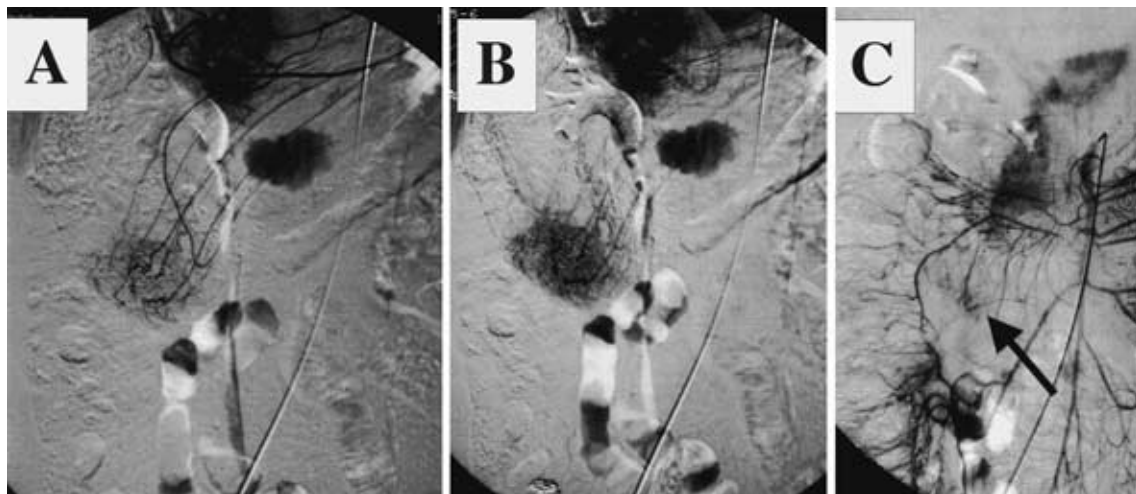


Fig. 5 Resected specimen showed hard tumor in the mesocolon (A) Formalin fixed. Tumor included fat tissue and invaded transverse colon (B)

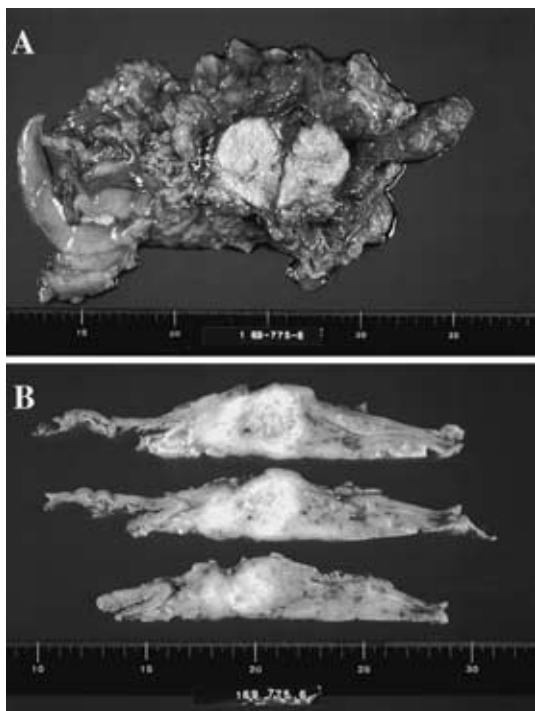
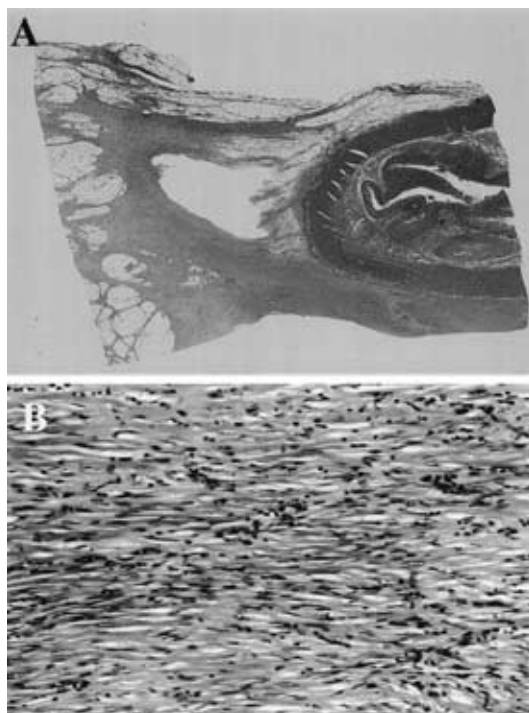


Fig. 6 Histological findings. A : Tumor invaded muscle layer of the colon (H-E stain, $\times 1$)

B : Abundant collagen fibers and fibroblasts without atypia were comparable to desmoid tumor (H-E stain, $\times 200$)



る¹²⁾。腹壁外 desmoid は、胸壁、上腕、大腿、肩などの筋肉に発症することが多い。組織学的には腹壁 desmoid と区別できないが、再発率が 70% と高く^{3,13)}、繰り返し切除が必要となる症例が多い。腹腔内 desmoid は成人の腸間膜、結腸間膜、腸骨窩などに生じ、腸間膜のものは mesenteric fibromatosis ともいわれる。組織学的には、他のタイプと類似するが、線維組織内に拡張した血管、硝子変性細胞成分が多いなどの報告もある³⁾。どのタイプの desmoid も臨床的には進行性で再発しやすいが、線維芽細胞は組織学的に比較的均一で著明な核分裂像や異型性を欠き、多量の膠原線維を伴って浸潤性発育の形態をとる。

本症例の desmoid tumor は、1958 年 Smith⁶⁾ が提唱した常染色体優性遺伝疾患である Gardner 症候群に見られるような、大腸ポリポース、骨腫は合併していなかった。単独で desmoid が発症する頻度は人口 100 万人あたり 2.4~4.3 人^{7,8)}と低いが、Gardner 症候群における発症率は 3.5~17.5%^{9,10)}と高頻度である。インターネットにより医学中央雑誌で 1970 年以降の文献を検索した結果、単独腹腔内 desmoid の本邦報告例は自験例を含めて 24 例であった。男女比は男性 18 例、女性 6 例で男性に多く、年齢は 15 歳から 72 歳と幅広かった。発生部位は小腸間膜 16 例、横行結腸間膜 4 例、骨盤腔内 2 例、虫垂間膜 1 例であった。

診断では、自覚症状に乏しく、腹腔内 desmoid の早期診断は困難である。血液検査でも腫瘍マーカーを含め特異的な変化は認められなかった。CT 検査でも特徴的な所見はないが、本症例では、CT、MRI で周囲への炎症波及が強く痛みも伴ったため、結腸壁からの異物穿破や腹腔内異物の肉芽腫も疑われた。血管造影では、腫瘍への流入血管が右胃大網動脈と考えられ、腫瘍濃染も伴い Schloffer's tumor との鑑別を必要とした。Intra-abdominal desmoid は、本症例の上腸間膜動脈造影で認められたような、わずかな腫瘍濃染や末梢血管の encasement を呈する乏血性腫瘍である。本症例では周囲組織の炎症所見が画像上強調されたと考えられた。

治療法は、手術療法、薬物療法、放射線療法な

どが行われており、外科的切除が第 1 選択とされる。単独腹腔内 desmoid の本邦報告例(24 例)では、観察期間に差はあるものの、再発は 1 例も認められなかった。Desmoid 全体では、切除後の再発率は 25~77%^{4,11)}と差はあるものの高く、特に局所切除では再発しやすく^{12,13)}、腫瘍切除のみに留めず広範囲で確実な切除が必要と思われる。本症例も組織学的には上行結腸への浸潤は認められなかったが、腫瘍の遺残を危惧し右半結腸切除を施行した。また、周囲主要臓器への浸潤のため切除困難な症例や、再発を繰り返す症例も少なくなく、抗 estrogen 剤¹⁴⁾、抗腫瘍剤¹⁵⁾、非 steroid 系消炎鎮痛剤¹⁶⁾などの薬物療法や放射線療法^{17,18)}の効果も報告されており、これらの集学的治療¹⁸⁾も必要と思われる。

本症例も、今後再発する可能性は十分あり、長期間にわたる CT などによる経過観察が必要と思われる。

文 献

- 1) 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
- 2) Enzinger FM, Weiss SW: Fibromatosis. Edited by Enzinger FM, Weiss SW. Soft tissue tumor. Second edition. The C.V. Mosby Company, St Louis. Washington D.C. Toronto, 1974, p145-163
- 3) 遠城寺宗知、岩崎 宏、小松京子：線維腫症とくにデスマイドについて。癌の臨 19: 553-556, 1973
- 4) Enzinger FM, Shiraki M: Musculoaponeurotic fibromatosis of the shoulder girdle (extra-abdominal desmoid). Cancer 20: 1131-1140, 1967
- 5) Kim DH, Goldsmith HS, Quan SH et al: Intra-abdominal desmoid tumor. Cancer 27: 1041-1045, 1971
- 6) Smith WG: Multiple polyposis, Gardner's syndrome and desmoid tumor. Dis Colon Rectum 1: 323-332, 1958
- 7) Reitamo JJ, Scheinin TM, Hayry P et al: The desmoid syndrome. Am J Surg 151: 230-237, 1986
- 8) Reitamo JJ, Hayry P, Nykyri E et al: The desmoid tumor. Am J Clin Patol 77: 665-673, 1982
- 9) Itoh H, Ikeda S, Oohata Y et al: Treatment of desmoid tumors in Gardner's syndrome. Report

- of a case. *Dis Colon Rectum* 31 : 459-461, 1988
- 10) Naylor EW, Leventhal E : Gardner's syndrome, Recent developments in research and management. *Dig Dis Sci* 25 : 945-959, 1980
- 11) Masson JK, Soule EH : Desmoid tumors of head and neck. *Am J Surg* 112 : 615-622, 1966
- 12) Das Gupta TK, Brasfield RD, O'Hara J : Extra-abdominal desmoids ; a clinicopathological study. *Ann Surg* 170 : 109-121, 1969
- 13) Posner MC, Shiu MH, New some JL et al : The desmoid tumor. *Arch Surg* 124 : 191-196, 1989
- 14) Kangas L, Nieminen AL, Blanco G et al : A new triphenylethylene compound, Fc-1157a. *Cancer Chemother Pharmacol* 17 : 109-113, 1986
- 15) Weiss AJ, Lackman RD : Low-dose chemotherapy of desmoid tumors. *Cancer* 64 : 1192-1194, 1989
- 16) Kiel K, Suit H : Radiation therapy in the treatment of aggressive fibromatoses (desmoid tumors). *Cancer* 54 : 2051-2055, 1984
- 17) Bataini JP, Belloir C, Mazabraud A et al : Desmoid tumor in adults : The role of radiotherapy in their management. *Am J Surg* 155 : 754-760, 1988
- 18) 野村 務, 恩田昌彦, 徳永 昭ほか : Gardner 症候群に合併し治療に難渋した desmoid 腫瘍の 1 例 . *日消外会誌* 25 : 2027-2031, 1992

A Case of Intra-abdominal Desmoid in the Mesocolon Transversum

Makoto Murakami, Hiroyuki Maeda, Yasuo Hirono, Takanori Goi, Atsushi Iida, Toshihisa Kimura,
Kazuo Takeuchi, Kanji Katayama, Kazuo Hirose and Akio Yamaguchi
The First Department of Surgery, School of Medicine Fukui Medical University

We report a sporadic intraabdominal desmoid tumor of the mesocolon transversum. A 52-year old woman had undergone surgery for myoma uteri at the age of 42. In September 2001, she went to a clinic for right lower abdominal pain and underwent abdominal computed tomography (CT). She was admitted for an intraabdominal tumor. Abdominal CT showed the 5 by 4 cm tumor was invasive close to the transverse colon. Barium enema, magnetic resonance imaging (MRI) and angiography suggested a mesenteric tumor or Schloffer's tumor, necessitating surgery. The tumor was in the mesocolon transversum with severe inflammation and invasion into ascending and transverse colon, so we conducted right hemicolectomy and lymph node dissection. Histopathological examination showed a mesenteric desmoid tumor, reported as an intraabdominal desmoid tumor.

Key words : intraabdominal desmoid tumor, mesenteric tumor, mesocolon

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 36 : 294-298, 2003]

Reprint requests : Murakami Makoto The First Department of Surgery, School of Medicine, Fukui Medical University
23-3 Shimoaiduki, Matsuoka-cho, Yoshida-gun, Fukui, 910-1193 JAPAN