

直腸原発 GIPACT の手術計画に multislice CT の多断面再構成像 , 3次元画像が有用であった 1例

藤田保健衛生大学医学部外科

岡本 規博 丸田 守人 前田耕太郎 佐藤 美信
升森 宏次 小出 欣和 松本 昌久 青山 浩幸

直腸 gastrointestinal pacemaker cell tumor (GIPACT) は , GIST の 1 つでまれな疾患であり , 小骨盤内に発生すると手術操作が困難なことが多い . 著者らは GIPACT の術式選択 , 腫瘍への到達法の決定にマルチスライス CT (MSCT) の多断面構成像 (MPR) および 3次元画像 (3D) が , 有用であった 1例を経験したので報告する . 症例は 36歳の男性で , 排便困難を主訴に来院し , 精査にて直腸粘膜下腫瘍と診断された . 術前に施行した MSCT の MPR にて任意の断面で腫瘍および周囲組織を観察し , 3D にて腫瘍と骨盤内臓器との関係をシミュレーションし , 術式および到達法を検討した . 術式は超低位前方切除術 , 経肛門吻合 , 一時的人工肛門造設術を施行した . 腫瘍細胞は c-kit , CD-34 に陽性で平滑筋アクチン , S-100 には陰性であり GIPACT と診断された . 術後の経過は良好で再発を認めていない .

はじめに

直腸の gastro intestinal stromal tumor (以下 , GIST) はまれな疾患であり , 近年免疫組織化学的に c-kit receptor 陽性のものはその起源が Cajal の介在細胞に由来することが明らかにされ gastrointestinal pacemaker cell tumor (以下 , GIPACT) として注目を浴びている . 腫瘍は大きく発育するため , 小骨盤内での手術操作は困難なことが多い . 著者らは GIPACT の術式選択および腫瘍への到達法においてマルチスライス CT (multislice computed tomography ; 以下 , MSCT) による多断面構成 (multiplaner reconstruction ; 以下 , MPR) や 3次元画像 (3-dimension image ; 以下 , 3D) を作成し , 術前手術のシミュレーションを行い , これらが手術進行に有用であった 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 : 36歳 , 男性

主訴 : 排便困難

家族歴 : 特記すべき事なし .

既往歴 : 特記すべき事なし .

現病歴 : 平成 12年 7月頃より便の狭小化と排便困難を認めていたが放置していた . 平成 13年 2月より症状の増強を認めたため近医肛門科を受診し , 前立腺肥大症と診断された . 治療開始後も症状に変化がなかったため , 再度近医を受診し , 直腸粘膜下腫瘍疑いにて平成 13年 3月 2日当科受診となった .

入院時現症 : 腹部は平坦で顔色は良好で , Virchow のリンパ節腫大は認めなかった . 直腸指診にて肛門縁より約 5cm の直腸前壁に可動性のある弾性硬の辺縁はなめらかな , 約 1/2 周性の腫瘤を認め , それ以外にはダグラス窩の圧痛や腫瘤も認めなかった . 肛門鏡にて観察するも粘膜には異常所見を認めなかった .

入院時検査所見 : 血液生化学検査 , 尿検査では異常値を認めなかった . 血清腫瘍マーカーは , CEA , CA19-9 ともに基準値以内であった .

注腸造影所見 : 肛門管上縁直上から直腸は右側前方から半球状に大きさ約 6cm で壁外性に圧排されていた . 粘膜面には所見を認めなかった . 腫

Fig. 1 Barium enema study showed a mass with smooth surface at the lower rectum.(tumor)



瘤より口側の腸管には異常を認めなかった (Fig. 1).

大腸内視鏡所見：肛門縁より 5cm の直腸前壁に、粘膜面は正常で中心にやや陥凹を伴う腫瘤を認めた。超音波内視鏡では、腫瘤は筋層に位置し、内部は不均一なモザイク状陰影を呈していた。

MRI 所見：腫瘤は他臓器とは比較的境界明瞭で、T1 強調画像では筋肉と iso intensity を呈し (Fig. 2a), T2 強調画像では脂肪と iso intensity を呈した (Fig. 2b)。造影後の T1 強調像では、内部は不均一な enhancement を呈し、中心壊死が疑われた。

血管造影所見：下腸間膜動脈造影では軽度拡張した上直腸動脈末梢に円弧状に囲まれた腫瘤を認めた。腫瘤は均質で血管が腫瘍表面より内部に栄養血管とし多数侵入していた。静脈相では比較的均一で境界明瞭な腫瘍濃染が認められ、hypervascular な腫瘤と考えられた。

Fig. 2 Magnetic resonance image(MRI)showed iso intensity mass with the muscle tissue on T1 weighting image and with the fat tissue on T2. a : Gd-DTPA T1 weighting image b : Gd-DTPA T2 weighting image

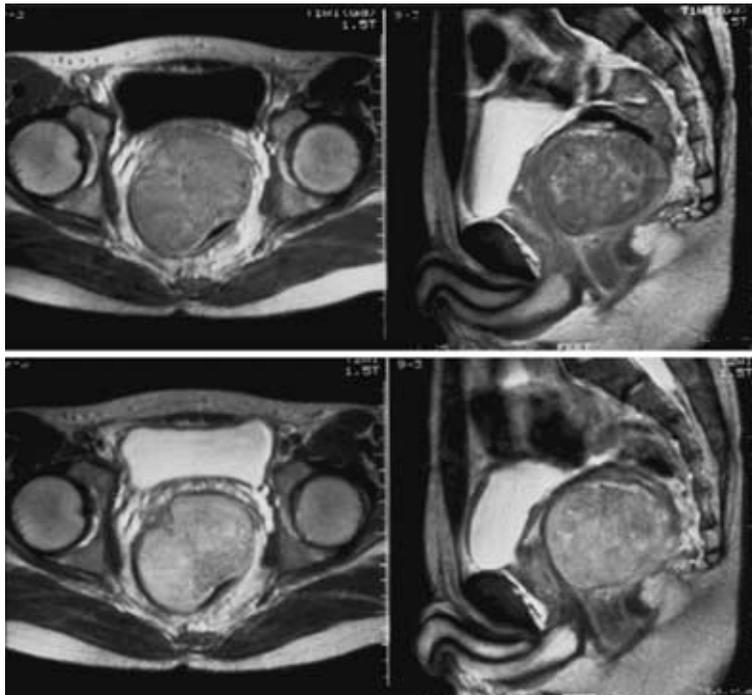


Fig. 3 Multi planer reconstruction (MPR) image demonstrated a solid tumor well demarcated from the other organs.



CT 所見：撮影装置は東芝社製のマルチスライス CT (Aquilion-8date acquisition system : Aquilion-8DAS) を使用し、スライス幅 2mm にてヘリカルスキャンした。造影剤は iohexol (300mgI/ml) 100ml を秒間 2.5ml で注入した。撮影開始は撮影タイミングを自動的に検出するアプリケーション (real prep) を使用し、造影剤注入後 30 秒後に動脈相を、79 秒後に平衡相を、134 秒後に肛門収縮時撮影をした。腫瘍は 65 × 85 × 60mm 大の他臓器とは比較的境界明瞭な淡い低吸収の充実性腫瘍であった。動脈相では淡く増強され内部には腫瘍血管と思われる線状の強い増強効果を認め、早期平衡相では内部がやや不均一に増強された。

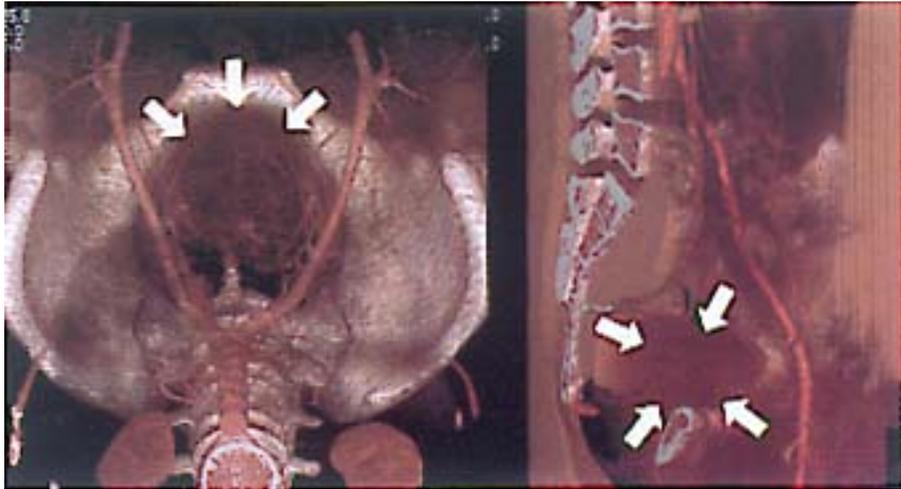
画像所見を総括し、腫瘍は他臓器との境界は明瞭な一部中心壊死を伴った充実性腫瘍と診断した。また、直腸を前方より圧迫し、一部直腸粘膜上に浸潤している巨大な粘膜下腫瘍と考えられた。明らかな遠隔転移は認めなかったが、大きさ

から悪性腫瘍も否定はできなかった。

MPR および 3D 画像所見：撮影した情報をもとに 1mm 間隔にてオーバーラップ再構成し、ワークステーション (東芝社製 ALATO-view) にて MPR および 3D を作成した。腫瘍は他臓器との境界は比較的明瞭な充実性腫瘍であったが、腫瘍径が 68 × 82 × 63mm と非常に大きく腫瘍への到達法および手術術式が以下のように検討された。

①比較的小柄な男性の骨盤内であり直腸前壁方向はほぼ腫瘍により占居されており、視野の確保は困難であると考えられた。②仙骨前面と直腸後壁には明らかな浸潤所見がなく、術野は確保可能であると考えられた (Fig. 3)。③骨盤 3D 画像にて血管走行、他臓器との位置関係、腫瘍の進展度などが十分に理解でき、術前骨盤内操作のシミュレーションが可能となった (Fig. 4)。④安静時、肛門収縮時、怒責時の直腸肛門撮影を行ったが、収縮時、怒責時には安静時と異なる位置に腫瘍の移動

Fig. 4 Simulation of the operation was planned according to a 3-dimension image. (tumor)



が確認されたため、腫瘍の明らかな肛門挙筋および肛門括約筋への浸潤は否定され、肛門温存は可能であると考えられた。以上から超低位前方切除および経肛門吻合術を選択し、一時的横行結腸人工肛門造設術も必要と考えた。

手術：直腸粘膜下腫瘍の診断にて、平成 13 年 4 月 17 日に超低位前方切除 経肛門吻合術および一時的的人工肛門造設術を施行した。

摘出標本所見：腫瘍径は 70 × 85 × 65mm 大の弾性硬の球状腫瘍で、粘膜面はなめらかで、明らかな粘膜浸潤を疑う所見は認めず漿膜および外膜には露出していなかった。剖面では一部中心壊死を伴っていた。

病理組織学所見：紡錘形細胞が束状に増生する細胞配列であり、一部に壊死や核分裂像を認めたが浸潤像には乏しかった。腫瘍細胞は c-kit 抗体、CD-34 に陽性で平滑筋アクチン、S-100 には陰性であり、gastrointestinal pacemaker cell tumor (GIPACT) または gastrointestinal stromal tumor (GIST) の uncommitted type と診断された。

考 察

直腸原発の GIPACT の本邦での報告は著者らの検索した範囲内で、本症例を含め 5 例目であ

る^{1)~6)}。その治療は、遠隔転移例や再発例を除くと外科的治療が唯一の治療法と報告されている。本腫瘍は、リンパ節転移はほとんどないため、剥離面よりの局所再発を防ぐために腫瘍の完全切除術が必要と考えられた。そのため特に他臓器と密接に配置された直腸では、術前の正確な画像診断や情報が大切である。自験例は腫瘍が大きく、肛門管に隣接しており肛門を温存するべきか否かや他臓器浸潤の問題が当初論議された。しかし、MSCT 撮影の MPR により任意の多断面にて腫瘍および周囲組織の観察が可能となり、腫瘍と骨盤内臓器との関係が明らかにすることができた。3D を自在に回転させ観察することにより腫瘍への到達法、さらに術式の決定にも有用であった。骨盤領域疾患における MSCT による MPR および 3D の有用性は、青山ら⁷⁾の報告にもあるように多くの術前情報を多数得ることができ有用である。著者らは 8 列高速ヘリカル CT を用いて短時間に MSCT を撮影し、MPR および 3D にて CT の利点と MRI の利点を兼ね備えた画像を作成しているため、組織成分診断を兼ねたダイナミックな画像として、多くの情報を得ることが可能となった。また、撮影時には怒責および肛門収縮時撮影を施行することにより、括約筋や肛門挙筋はもちろんのこと骨

盤底筋群の変化をそれぞれ独立した形態的で直接観察している。これにより、腫瘍の周囲筋組織への浸潤の有無も術前に診断可能と考えられた。さらに MPR は周辺臓器の評価が同時に可能となり、直腸肛門周囲疾患の診断にも有用であると考えられる。MRI でも矢状断、冠状断による観察が可能であるが、撮影時間の延長や体位に束縛されるなどの問題があり、一般臨床において、実用的であるとはいえない。このように術前に得られた情報により、安全かつ確実に手術操作が可能となり、手術時間の短縮と術中術後の合併症の予防にも有効であると考えられた。本症例は MPR および 3D により腫瘍を立体的に観察し、若年であることや根治性と術後の肛門機能を十分考慮し、超低位前方切除術・経肛門吻合・一時的人工肛門造設術を施行することができた。術後一時的に排尿障害を呈したが、経過は良好であった。病理組織学的には悪性所見は認められなかったが、免疫染色にて c-kit, CD34 に強陽性を示したこと⁸⁾や腫瘍径が大きいことを考慮すると、嚴重に経過観察することが望ましい^{9,10)}と考えられる。

文 献

1) Thomsen L, Robinson TL, Lee JC et al : Intestinal

- cells of Cajal generate a rhythmic pacemaker current. *Nat Med* 4 : 848 851, 1998
- 2) Kindblom LG, Remotti HE, Aldenborg F et al : Gastrointestinal pacemaker cell tumor (GIPACT) : Gastrointestinal stromal tumors show phenotypic characteristics of the intestinal cells of Cajal. *Am J Pathol* 152 : 1259 1269, 1998
- 3) 松本匡史, 山口真彦, 成原健太郎ほか : 直腸原発の Gastrointestinal stromal tumor(GISTs) uncommitted type の 1 例 ; 免疫組織化学的検討による悪性度評価 . *消外* 23 : 254 259, 2000
- 4) 今津浩喜, 浦口 貴, 小林栄孝ほか : 直腸原発 Gastrointestinal stromal tumor の 1 症例 . *日消外会誌* 33 : 673 677, 2000
- 5) 野澤 寛, 平野 誠, 村上 望ほか : C-kit 陽性の gastrointestinal stromal tumor の 1 例 . *日消外会誌* 34 : 287 291, 2001
- 6) 倉立真志, 近石 寛, 矢田清吾ほか : 直腸原発 gastrointestinal pacemaker cell tumor の 1 例 . *臨外* 57 : 129 132, 2002
- 7) 青山浩幸, 丸田守人, 前田耕太郎ほか : 術式決定にヘリカル CT が有用であった成人仙尾部奇形腫の一例 . *日本大腸肛門病会誌* 54 : 267 272, 2001
- 8) 横井公良, 山下靖彦, 田中宣威ほか : 直腸 Gastrointestinal tumor(GIST) の 1 例 . *日本大腸肛門病会誌* 54 : 424 430, 1999
- 9) Ernst SI, Hubbs AE, Przygodzki RM et al : KIT mutation pretends poor prognosis in gastrointestinal stromal/ smooth muscle tumor. *Lab Invest* 78 : 1633 1636, 1998
- 10) 高見元敬 : GIST の診断指針 2 悪性度の判定を中心に . *外科治療* 85 : 353 354, 2001

Usefulness of Multislice Computed Tomographic Examination for Determining an Approach to GIPACT in the Rectum Report of a Case

Norihiro Okamoto, Morito Maruta, Koutarou Maeda, Harunobu Sato, Koji Masumori, Yoshikazu Koide, Masahisa Matsumoto and Hiroyuki Aoyama

Department of Surgery School of Medicine, Fujita Health University

We report a case of gastrointestinal pacemaker cell tumor(GIPACT) with special reference to the usefulness of multiplaner reconstruction (MPR) and three-dimensional imaging (3D) by multislice computed tomography (MSCT) for selecting the surgical procedure and approach. A 36-year-old man with constipation was admitted for further examination was found in diagnostic imaging studies to have a submucosal tumor in the lower rectum. MPR and 3D were used to select the tumor approach and surgical procedure, resulting in a successful ultralow anterior resection with transanal anastomosis. Histological examination of the resected specimen showed the tumor consisted of spindle-shaped cells. Immunohistochemical testing was negative for s-100 and muscle-actin, and positive for CD34 and c-kit and the tumor was diagnosed as GIPACT. The postoperative course was uneventful except for temporary urinary dysfunction.

Key words : gastrointestinal pacemaker cell tumor, multi-slice computed tomography, gastrointestinal stromal tumor

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 36 : 1237 1241, 2003]

Reprint request : Norihiro Okamoto Department of Surgery, Fujita Health University School of Medicine
1 98 Dengakugakubo, Kutsukake-cho, Toyoake, 470 1192 JAPAN