

症例報告

腹部大動脈分岐部の内分泌細胞腫瘍が先行して発見された 11mmの直腸カルチノイドの1切除例

要町病院付属消化器がんセンター, 癌研有明病院消化器外科¹⁾, 京都府立医科大学病理部²⁾, 癌研究所病理部³⁾

太田 博俊 関 誠¹⁾ 柳沢 昭夫²⁾
二宮 康郎 加藤 洋³⁾

大動脈分岐部の endocrine cell tumor を契機に発見された直腸カルチノイドを治癒切除した5年後, 下腹神経領域に再発し根治摘出できた1例を経験した. 症例は43歳の男性で, 大動脈分岐部に40mm大の神経鞘腫と臨床診断し切除され, 組織診断で内分泌細胞腫瘍と診断された. 特殊染色法でもそれ以上の鑑別診断はできなかった. カルチノイドも視野に入れ精査の結果, 2年後に径11mmの直腸カルチノイドが発見され, リンパ節郭清を伴った神経温存低位前方切除を施行した. 初回腫瘍は特殊染色再検でカルチノイドの転移と訂正された. 5年後, 仙骨前面に腫瘍出現しカルチノイドの再発を疑い, 腫瘍摘出術をした. 組織診は下腹神経に浸潤したカルチノイドの再発であった. 45歳の年齢を考えず下腹神経合併切除すれば再発はなかったと考えられた. 2006年1月現在再発の兆候なく健在であるが, 十分な経過観察が必要である.

はじめに

内視鏡機器の普及により, また検診の普及により直腸の小病巣が無症状で発見される機会が多くなった. その中において, 直腸カルチノイドは, 消化器を標榜する第一線医家において時に発見される疾患であるが, 治療方法に一定のガイドラインがないことで種々の治療がされている. 小さいというだけで安易に内視鏡切除されることがあるが, 小さくても近傍リンパ節転移例があるので¹⁾, 十分な熟慮のうえでの治療方法の決定が必要である. 今回, 腰部の倦怠感, 下腹部の鈍痛を主訴に超音波検査とCTスキャンを行い, 後腹膜腫瘍と診断し, さらに神経鞘腫 (schwannoma) の診断疑いで開腹切除した. 組織診断で内分泌細胞腫瘍 (endocrine cell tumor; 以下, ECT と略記) となり原発巣か, 転移巣かの判断がつかない結果をえ, 検診を含めた精査の結果, 直腸に小さいカルチノイドを発見し手術を施行した. しかし, その後も稀有な経過をたどった症例を経験したので報告す

る.

症 例

患者: 43歳, 男性

家族歴: 特記すべきことなし.

主訴: 腰部の倦怠感, 下腹部の鈍痛.

病歴: 通常の生活をするも仕事や食事に関係なく, 上記症状が続くため近医を受診した. 超音波検査とCT (Fig. 1, 2)で腹部大動脈分岐部に径40mmの腫瘍ありと診断された. 術前の血管造影検査では, 栄養血管は同定されなかった.

第1回手術: 岬角の前で腹部大動脈分岐部の間にあるため, 後腹膜腫瘍特に下腹神経由来の神経鞘腫の診断のもとに, 1995年3月中旬, 腫瘍摘出術が施行された. 腫瘍は39×30×20mm (Fig. 3)で特殊染色を含めた病理の結果, NSE (+) だけのため, ECTと診断され, 後腹膜原発か転移かは判断できないとされた (Fig. 4). また, カルチノイド腫瘍か末梢性未分化神経外胚葉性腫瘍 (以下, PNETと略記) などの鑑別診断は特染上からも確診にはいたらなかった. その中で, 一番多いカルチノイドであることも考慮に入れ検索することにし, 消化管を中心に検索した結果, 直腸に径

<2006年3月22日受理>別刷請求先: 太田 博俊
〒171-0043 豊島区要町1-11-13 要町病院付属消化器がんセンター

Fig. 1 Pelvic CT showed 40mm tumor in diameter in front of promontorium. (cross section. arrow)



Fig. 2 Pelvic CT showed same tumor in Fig. 1. (sagittal ebene. arrow)



Fig. 3 Macroscopic findings of the resected tumor specimen showed necrotic yellowish elastic spongy like cutsurface.

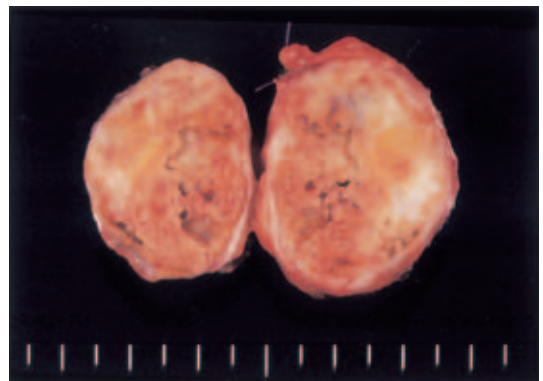
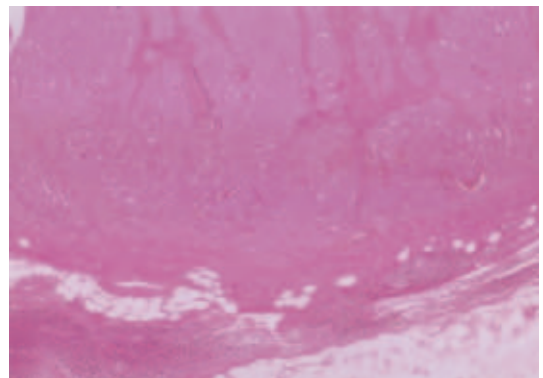


Fig. 4 Histological findings showed Endocrine Cell Tumor with special dyeing NSE (+) only.



9×11mm のカルチノイドを発見した (Fig. 5)。主病巣は小さいが、分岐部の腫瘍はカルチノイドに関係した腫瘍であると考えたため、リンパ節郭清を伴った手術を計画した。

第2回手術：1997年10月下旬に年齢を加味し、術中迅速組織診を行いつつ下腹神経を温存する超低位直腸前方切除＋一時的雙孔式回腸瘻を施行した (Fig. 6)。肉眼的ならびに初回の術野を含めた周囲の術中迅速組織診では、リンパ節転移なしと診断した。術後の標本病理検査の結果、mesorectum 内の近傍リンパ節に転移 n1 (+) を伴うカルチノイドであった (Fig. 7)。初回手術標本と照会し特殊染色をやり直した結果、グリメリ

ウス(-)、フォンタナメイソン(-)、S-100(+), クロモグラニン (+), NSE (+) となり、組織学的にも直腸カルチノイドの転移であるとの訂正診断結果を得た。

第3回手術：1998年4月上旬に一時的に造設した人工肛門を予定通り閉鎖した。その後、経年的に検診をしていたが5年経過した2003年8月頃、下腹部痛が出現した。初回の痛みと違って放散痛であり、暴飲暴食後の軽いイレウスと診断し、数日間の絶食療法で軽快していたが、CT (Fig. 8)、MRI (Fig. 9) の結果、仙骨前面の径 30mm の腫瘍による神経圧迫痛と診断され、下腹神経を温存したことによる Schwannoma, またはカルチノイドの再発も視野に入れ、手術を計画した。

Fig. 5 Endoscopic ultrasonography showed a small elevated lesion in the rectum. (arrow)

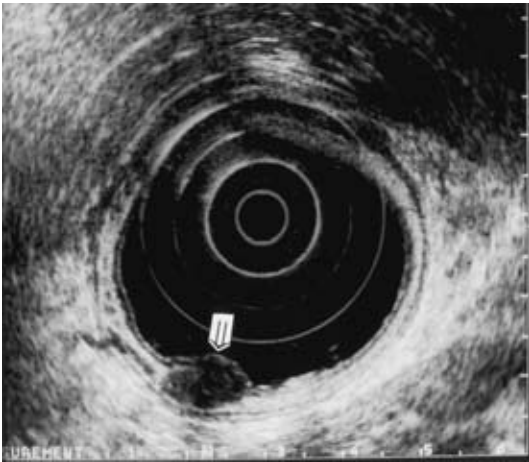
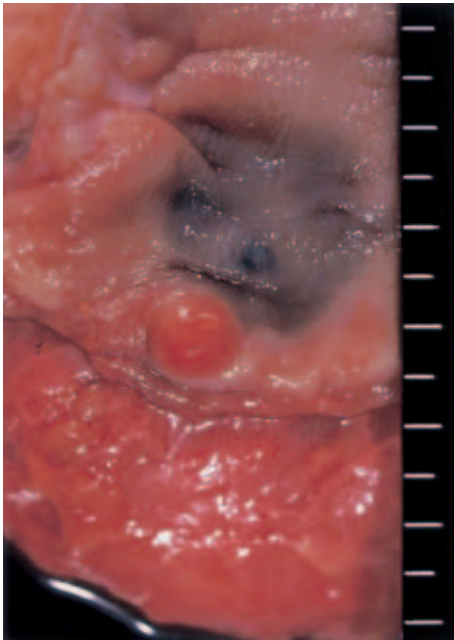


Fig. 6 Macroscopic findings of the operative resected specimen showed 11mm tumor in size of submucosal elevated lesion.



第4回手術：2003年10月上旬に開腹し腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は初回摘出部よりやや足側で左右総腸骨静脈合流部より下方の仙骨前面にあり、下腹神経が走行した部位に一致し、28×23×

Fig. 7 Histological findings was diagnosed Carcinoid with special dyeing NSE(+) S-100(+) chromoglanin A(+) Grimelius(+) Fontana-masson(+).

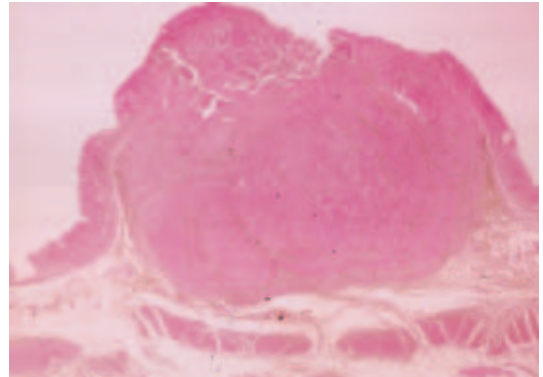


Fig. 8 Pelvic CT showed recurrent tumor in front of sacrum near bifurcation of common iliac vein. (arrow)



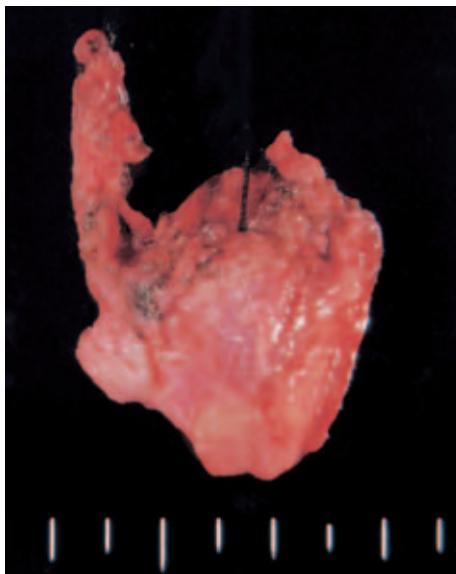
18mm サイズの腫瘍であった(Fig. 10)。線維性癒着が高度であったが左総腸骨静脈血管壁を合併切除し仙骨壁より剥離し、下腹神経を含めて合併切除した。病理組織診断はカルチノイドで神経線維を巻き込んだ状態にあり、初回手術の摘出標本と直腸の主病巣と同じ組織像であった(Fig. 11)。術後は疼痛も消退し、順調に回復した。

現在再発もなく経過しているが定期的な経過観察が必要であると考える。

Fig. 9 Pelvic MRI showed same recurrent tumor in Fig. 8. (arrow)



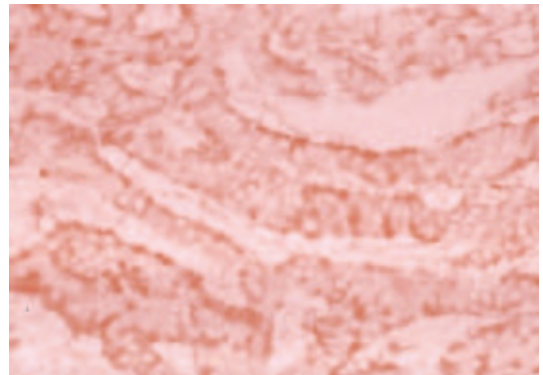
Fig. 10 Local recurrent tumor was combined resection with invasion to the hypogastric nerve.



考 察

大腸のカルチノイドは虫垂と直腸が好発部位であることは言を待たない¹⁾。通常は、原発巣が発見されると10mm以下であれば内視鏡的切除をすすめる施設が多いが、腫瘍サイズと脈管侵襲の有無で所属リンパ節の転移を懸念し、リンパ節郭清を伴った手術が必要となるが、術式を含めたその判断は非常に難しい。斉藤ら²⁾、伊神ら³⁾は、小さくてもリンパ節転移や肝転移があったと報告してい

Fig. 11 Histologically this tumor was same tissue namely Carcinoid in comparison with the lesion of promontorium and rectum. Chromoglanin (+) ×400



る。曾我⁴⁾によれば、腫瘍径が10mm未満のリンパ節転移率は4.3%、10~19mmでは27.5%、20~29mmでは58.8%、30mm以上では80%と高率であったといい、固武ら⁵⁾は深達度smまでであればリンパ節転移率は5.3%、mpに達すると53%と高率になるとしている。10mm未満でsmでもリンパ節転移があるので、追加手術の決定は経験のうえに立つ熟慮判断によることになる。今回経験した症例は、径11mmで深達度sm2のカルチノイドが40mm大のECTとして大動脈分岐部に転移していた。岩渕ら⁶⁾は、消化管内分泌細胞腫瘍は低異型度低悪性度のカルチノイド腫瘍と高異型度高悪性度の悪性内分泌細胞腫瘍とに2大別されるとしている。また、カルチノイドはslow growingな腫瘍であるようで、直腸カルチノイド手術後12年目に肝転移をした例⁷⁾も報告されているので、内視鏡切除や、局所切除で術後の短期間の経過観察で根治できたと安易に判断せず、長期的観察の必要があると思われた。また、結腸にできたカルチノイドを切除後、7年後に別の部位にできた例⁸⁾が報告されているように多彩な経過をたどると考えられる。

本症例も第3回手術後、経過観察中の5年後に下腹部の神経痛様疼痛が出現したことにより、CTやMRIで腫瘍を発見し、臨床経過よりカルチノイドの再発と臨床診断され、摘出手術が施行された。

医学中央雑誌で2000年1月から2004年12月までkey wordは「直腸カルチノイド」,「神経鞘腫」,「内分泌細胞腫瘍」,「大動脈分岐部」の項目で検索してみたが,同様の所見と経過をたどった症例の発表は見出しえなかった。

直腸カルチノイドは好発部位であるため,疾患としては別にめずらしいことはない。ただ,発見された経緯が特異であったため,術式に対する検討の余地が必要であったと思われた。本症例は,直腸カルチノイドの病巣が径11mmと小さいが,初回切除した腫瘍の組織が40mm大のカルチノイドの転移と診断されたことで,直腸の局所切除ではなく低位前方切除が必須であると判断したことは当を得ていた。

2003年8月の再発は,直腸低位前方切除を施行した際に壮年であったため,また,近年の術式が機能温存に向かっていることもあって下腹神経を温存したことが最大の再発原因であったと考えられる。初回切除腫瘍がECTと診断されたが,直腸にカルチノイドが発見された時点で転移と判断し,神経を合併切除する術式を選択していれば第

4回目の手術は必要なかったと反省し今後の教訓としたい。

文 献

- 1) 小泉浩一,丸山雅一,太田博俊ほか:直腸カルチノイドの診断と治療.胃と腸 24:883—890,1989
- 2) 斉藤典才,原 和人:リンパ節,肝転移をきたした腫瘍径9mmの直腸カルチノイドの一例.日臨外会誌 62:752—756,2001
- 3) 伊神 剛,長谷川洋,小木曾清二ほか:腫瘍径12mmで異時性肝転移をきたした直腸カルチノイドの一切除例.日消外会誌 32:2283—2286,1999
- 4) 曾我 淳:本邦 Carcinoid 腫瘍—1342 症例の統計学的分析一.外科 48:1397—1407,1986
- 5) 固武健二郎,米山桂八,宮田潤一ほか:直腸カルチノイド—自験5例と本邦報告例の集計一.日本大腸肛門病会誌 37:261—266,1984
- 6) 岩渕三哉,渡辺 徹,草間文子:大腸内分泌細胞腫瘍—カルチノイド腫瘍と内分泌細胞癌一.外科治療 91:49—58,2004
- 7) 石崎直樹,浜田信男,門野 潤ほか:術後12年目に肝転移をきたした直腸カルチノイドの一例.日臨外会誌 61:1506—1510,2000
- 8) 野村昌哉,宗田滋夫,井上善文ほか:下行結腸カルチノイド根治術後7年目に異時発生した上行結腸カルチノイドの一例.日消外会誌 37:217—222,2004

A Case of Rectal Carcinoid 11mm in Diameter at First Diagnosed as Endocrine Cell Tumor at the Bifurcation of Abdominal Aorta

Hirotohi Ohta, Makoto Seki¹⁾, Akio Yanagisawa²⁾,
Yasuro Ninomiya and Yo Kato³⁾

Gastrointestinal Cancer Center, Kanamecho Hospital

Department of Gastrointestinal Surgery, Ariake Cancer Institute Hospital¹⁾

Department of Pathology, Kyoto Prefectural University of Medicine²⁾

Department of Pathology, Cancer Institute³⁾

A 50-year-old man admitted for a possible recurrent carcinoid tumor involving the hypogastric nerve had undergone low anterior resection preserving the hypogastric nerve 5 years earlier due to a rectal carcinoid 11 mm in diameter, initially diagnosed as an endocrine tumor of 40mm located at the bifurcation of the abdominal aorta. Regional lymph node metastasis was observed histologically and the tumor at the bifurcation was a metastatic lymph node. After about 4 years of follow-up he developed severe hypogastric pain. CT and US revealed a tumor involving the hypogastric nerve. We conducted tumor resection under the suspicion of carcinoid tumor recurrent in the anterior floor of the sacrum. Histological findings revealed a carcinoid tumor involving the hypogastric nerve. Initial surgery including resection of the hypogastric nerve may have prevented recurrence, although the patient was only 45 years old at the first surgery. He remains well without recurrence 24 months after the third surgery.

Key words : rectal carcinoid, schwannoma, lymph node metastasis of bifurcation of abdominal aorta

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 39 : 1632—1637, 2006]

Reprint requests : Hirotohi Ohta Gastrointestinal Cancer Center, Kanamecho Hospital
1-11-13 Kanamecho, Toshima-ku, 171-0043 JAPAN

Accepted : March 22, 2006