

症例報告

大腸原発髄外性形質細胞腫に腹腔鏡下回盲部切除術を行った1例

東海大学医学部付属八王子病院外科, 同 病理診断科¹⁾, 東海大学医学部付属病院外科²⁾

田島 隆行 向井 正哉 深澤 麻希 矢澤 直樹
福光 寛 中村 雅登¹⁾ 幕内 博康²⁾

症例は74歳の男性で、市健診にて便潜血陽性を指摘され近医を受診した。下部消化管内視鏡検査で上行結腸の悪性リンパ腫が疑われ当院受診となった。身体検査所見で表在リンパ節は触知しなかった。注腸造影 X 線検査と下部消化管内視鏡検査にて盲腸内に長径約2cm 大の1型腫瘍を認め生検の免疫組織染色検査で髄外性形質細胞腫と診断された。Fluorodeoxy glucose positron emission tomography は同部に強い集積を認めたが転移所見は認めなかった。このため腹腔鏡下回盲部切除術 D2 リンパ節郭清を施行した。病理組織学的には形質細胞のびまん性増殖を認め、壁内深達度は粘膜筋板までκ鎖産生を伴っていたがリンパ節転移は認めなかった。術後18か月の現在、転移・再発を認めず外来通院中である。大腸原発髄外性形質細胞腫はまれで本邦では本症例で5例目である。特に腹腔鏡下回盲部切除術を施行した症例は、国内外を含め報告例は本症例が初例であると考え文献的考察を加えて報告する。

はじめに

大腸原発髄外性形質細胞腫は極めてまれな疾患であり、その報告は少ない。我々が Medline にて期間設定せずに、また医学中央雑誌にて1975年～2008年までの期間、「大腸形質細胞腫」、「髄外性形質細胞腫」、「extramedullary plasmacytoma」のキーワードで検索しえた範囲で詳細不明な症例報告を除くと、本症例は本邦において計5例を認めるのみであった^{1)~4)}。我々は市健診の便潜血にて発見され精密検査の fluorodeoxy glucose positron emission tomography (以下、FDG-PET) で盲腸にて限局性集積を認め、腹腔鏡下回盲部切除術にて根治切除術が可能であった大腸原発髄外性形質細胞腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：74歳、男性

主訴：便潜血陽性

家族歴/既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：2007年の市健診で便潜血検査陽性を

指摘され、近医にて大腸内視鏡検査を施行した。盲腸の腫瘍性病変が指摘され、生検で悪性リンパ腫が疑われ精査加療目的で紹介入院となった。

入院時現症：身長160cm、体重65.5kg、血圧150/90mmHg、脈拍62回/分、眼瞼/眼球結膜に貧血・黄疸は認めなかった。腹部検査所見では平坦・軟で腫瘍や全身の表在リンパ節も触知しなかった。

血液生化学検査：軽度の貧血が認められたが白血球分画に異常所見は認められなかった。腫瘍マーカーをはじめ、血清中免疫グロブリンや血清/尿中の Bens-Jones 蛋白にも異常値は認められなかった (Table 1)。

骨髄生検(胸骨穿刺吸引細胞診)：細胞形態や細胞分画に異常所見は認められなかった。

腹部単純 X 線写真：特記すべき異常所見は認められなかった。

腹部超音波検査：上行腸間膜および大動脈周囲のリンパ節に腫脹は認められなかった。

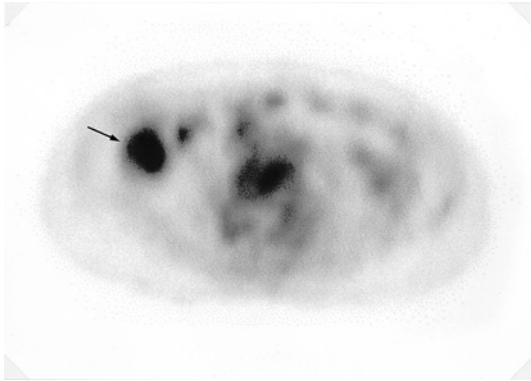
腹部 CT：盲腸に壁の限局性肥厚を認めたが、周囲組織への浸潤像やリンパ節腫脹は認められなかった。

<2009年7月22日受理>別刷請求先：田島 隆行
〒192-0032 八王子市石川町1838 東海大学医学部
付属八王子病院外科

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	5,600 /mm ³	GOT	16 IU/l
(neutro : 55.8% lympho : 34.9%)		GTP	10 IU/l
RBC	411 × 10 ⁴ /mm ³	LDH	156 IU/l
Hb	12.1 g/dl	ALP	181 U/l
Plt	18.2 × 10 ⁴ /mm ³	T-Bil	0.5 mg/dl
T-Pro	7.5 g/dl	BUN	18 mg/dl
		Cr	1.0 mg/dl
Protein fraction		Na	144 mEq/l
Alb : 57.0 %	IgG 1,603	K	4.2 mEq/l
α1 : 3.1 %	IgA 324	CEA	1.0 ng/dl
α2 : 8.7 %	IgM 79	CA19-9	7.0 U/ml
β : 11.9 %	IgD 0.6 >	B-J pro(in blood·urine)	(-)
γ : 19.3 %	IgE 20.9		

Fig. 1 An FDG-PET image showing abnormal accumulation of FDG in the ileocecum.



PET-CT : 盲腸の病変部に一致して FDG の異常集積像を認めた (Fig. 1).

注腸造影 X 線検査 : 盲腸の回盲弁対側に 1 型の隆起性病変を認めた (Fig. 2).

上部消化管内視鏡検査 : 軽度の慢性胃炎を認める以外に特記すべき所見を認めなかった。

大腸内視鏡検査 : 盲腸の回盲弁対側に径約 2 cm 大の 1 型の腫瘍性病変を認め、病変部から組織生検を行った。さらに回盲弁下唇に径 15mm 台の腫瘍を認めた (Fig. 3)。

組織生検検査 : 盲腸の回盲弁対側の 1 型の腫瘍性病変の生検から幼弱な車軸様細胞が認められ、免疫組織染色検査を行い髄外性形質細胞腫と診断した。また、回盲弁下唇に径 15mm 台の腫瘍の生検では腺腫の診断であった。

Fig. 2 A type-1 protruding lesion is observed opposite the ileocecal valve in the cecum.

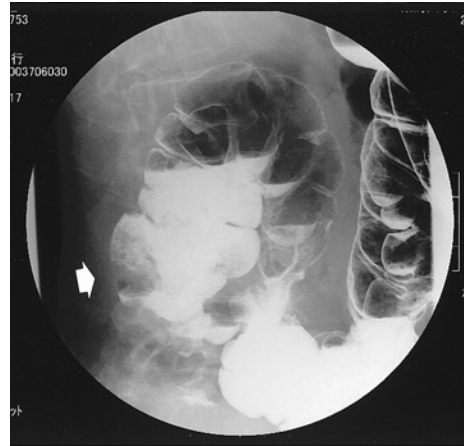


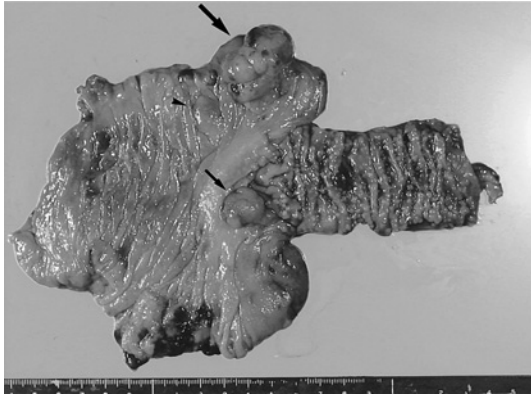
Fig. 3 A type-1 lesion measuring 20 mm in diameter is observed on the side opposite to the ileocecal valve (big arrow), and a tumor measuring 15 mm in diameter is observed in the lower lip of the ileocecal valve (small arrow).



以上より、盲腸原発の髄外性形質細胞腫と診断し、腹腔鏡下回盲部切除術 (D2) を施行した。

手術所見 : 臍上部より腹腔鏡を挿入して腹腔内を観察したが腹水や腹膜転移巣を認めず、盲腸部から上行結腸にかけて漿膜面に異常所見を認めなかった。Toldt's fusion fascia と後腹膜下筋膜の剥離を十分に行った後、右上腹部を約 5cm 開腹し回盲部切除術 (D2) を施行した。

Fig. 4 A type-1 lesion measuring 20 mm in diameter is observed in the ascending colon (big arrow), a submucosal tumor measuring 10 mm in diameter is observed in the oral of type-1 lesion (arrow head), and a mucosal tumor measuring 15 mm in ileocecal valve (small arrow).



切除標本肉眼検査所見：腫瘍は盲腸に生じた径2cmの1型腫瘍であった。腫瘍の口側に径1.0cmの粘膜下腫瘍と回盲部にも径1.5cmの腫瘍を認めた (Fig. 4)。

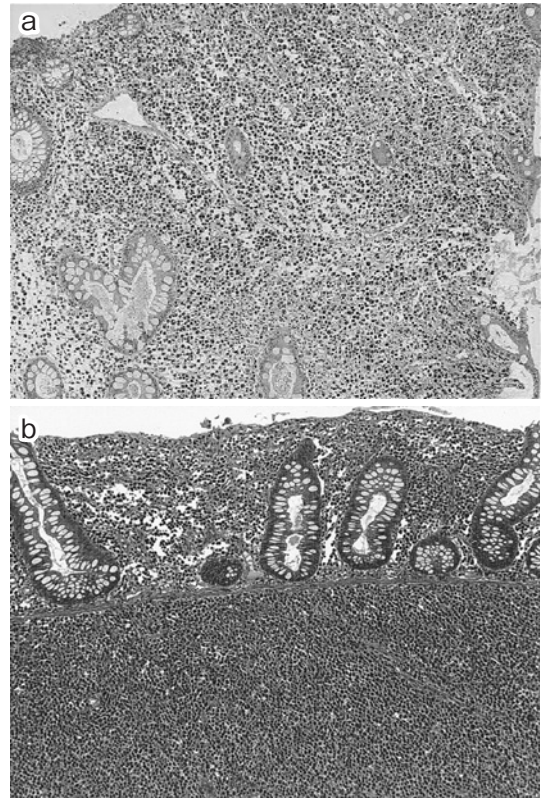
病理組織学的検査所見：1型の腫瘤 (Fig. 5a) は粘膜筋板に留まっており、口側の粘膜下腫瘍 (Fig. 5b) も同様に変形した車軸様細胞で形成されていた。二つの腫瘍は鏡検で連続性がないことが確認され多発性の病変と診断した。免疫組織化学染色検査では、これらの異型細胞は BCL-2, κ 鎖の陽性所見が認められ、CD3, CD20 は陰性で lymphoepithelial lesion を認めなかったことから盲腸の原発性髄外性形質細胞腫と診断された。また、回盲部の腫瘍は腺腫であった。

術後経過：術後経過は良好で、現在、術後約18か月、再発・転移の徴候を認めず外来通院加療中である。

考 察

形質細胞腫は、多発性骨髄腫、形質細胞性白血病、孤立性形質細胞腫と本症例にあたる髄外性形質細胞腫の4種類に分類されており、B細胞系の最終分化細胞である形質細胞に由来する腫瘍である⁵⁾。中でも髄外性形質細胞腫は、Alexiouら⁶⁾が1905年から1997年の間に869例について検討し

Fig. 5 The tumor is composed of deformed cells like wheel axes. These atypical cells showed positive immunohistochemical staining for BCL-2 and κ chain, but negative staining for CD3 and CD20; there were no lymphoepithelial lesions. A type-1 lesion (a) submucosal tumor (b).



ており原発部位は上気道・口腔からは714例がほとんどで残り155例がそれ以外から発生している。消化管原発は62例のうち結腸は10例(6.5%)、盲腸9例(5.8%)、直腸は5例(3.2%)であったとしている。我々が期間設定しない Medline と 1975年～2008年までの期間の医学中央雑誌で「大腸形質細胞腫」、「髄外性形質細胞腫」、「extramedullary plasmacytoma」のキーワードで検索しえたかぎり本邦では、本症例で5例目にすぎない^{1)~4)} (Table 2)。男性4例、女性1例と男性に多く、症状は腹痛と血便であったが、本症例のように自覚症状がなく健診の潜血検査で発見されたものは本症例で2例目であった。腫瘍の局在は直腸に3例、横行結腸に1例であったが盲腸は本症例

Table 2 Reported case of extramedullary plasmacytoma of the colorectal in Japan

Author	Year	Age	Sex	Chief complain	Location	Preope diagnosis	Treatment	Tumor count
1 Terada ¹⁾	1977	47	female	bloody diarrhea	rectum	adenocarcinoma	Miles' ope	1
2 Fujimori ²⁾	1993	18	male	melena	rectum	—	polypectomy	1
3 Yanagimoto ³⁾	2001	78	male	abdominal pain	transverse	undifferentiated carcinoma	Rt.hemicolectomy	1
4 Hashiguchi ⁴⁾	2004	47	male	bloody diarrhea	rectum	plasmacytoma	EMR → Rad.Tx	1
5 Our case		74	male	stool occult blood	cecum	plasmacytoma	ilioi-cecul resection	2

1例だけであった。腹腔鏡下に切除しえた症例は海外の文献を含めて本症例のみであった。また、術前の生検検査では未分化癌や悪性リンパ腫と診断されることが多いようである⁷⁾。

Soutar ら⁸⁾は髄外性形質細胞腫の診断基準を、①腫瘍性形質細胞腫により髄外性腫瘤を形成、②組織学的に正常な骨髄像、③正常な長骨であること、④形質細胞疾患が関連した貧血・高Ca血症・腎機能障害を認めない、⑤血清・尿中免疫グロブリンの単クローン性増殖を認めないこと、の5項目を挙げている。また、確定診断には形質細胞の増殖以外に免疫組織学的検索による単クローン性増殖の証明が必要である⁹⁾。多発性骨髄腫ではIgG型、上気道原発ではIgA型が多いと報告されているが、自験例はIgG型、κ型の髄外性形質細胞腫であった。

髄外性形質細胞腫の治療法は、Soutar ら⁸⁾は、①頭頸部では放射線治療が第1選択、②頭頸部以外では可能であれば手術による完全切除、③不完全切除例に対しては術後放射線治療、④完全切除症例では術後放射線治療は推奨できない、⑤補助化学療法は腫瘍径が5cmを超える進行症例で検討するものとしている。本症例では腫瘍が2か所に存在していたが、採血検査とFDG-PETを含む画像診断においても転移・再発を認めず現在術後18か月であることから完全切除術をしえたものと考えられた。

術後の経過観察において、本疾患は臨床症状・占居部位・肉眼形態に特有の所見は認められないことが多く、これまでの報告例はすべて単発であったが本症例は盲腸に2か所あり多発性の病変でこの点で本邦初例であった^{1)~4)}。免疫グロブリンを産生する腫瘍量が少ないことやこれらの分泌が

障害されるなどの理由で多発性骨髄腫に特異的なM蛋白や血清・尿中のBens-Jones蛋白が証明されることは少ない¹⁰⁾。本症例では術前のFDG-PETで病変に一致した強い集積像を認めた。これまでの報告例では大腸髄外性形質細胞腫でのFDG-PETの報告はなかった。他臓器原発例や多発性骨髄腫では、これらの報告^{11)~14)}があることから、大腸原発性髄外性形質細胞腫においても術前の転移診断に有用であるものと考えられ、腹腔鏡手術の適応の判断の一つとして有用であると考えた。

予後については国内外でも20数例の報告しか認められず、今後は腹腔鏡の手術適応と長期治療成績については症例数の蓄積が待たれるが、上気道以外を原発とする症例が64.7%で再発を認めなかったと報告されており完全切除例は予後良好であると考えられた⁶⁾。

文 献

- 1) 寺田昌功, 榊原 宣, 鈴木博孝ほか: 直腸に原発したとおもわれる髄外性形質細胞腫の1例. 日臨外医会誌 10: 101—105, 1977
- 2) 藤盛修成, 大高道郎, 桑原敏行ほか: 直腸孤立性髄外性形質細胞腫の1例. Gastroenterol Endosc 35: 1889—1893, 1993
- 3) 柳本邦雄, 桑尾定仁, 篠田 宏ほか: 腸重積にて発症した大腸形質細胞腫の1例. 診断病理 18: 147—150, 2001
- 4) Hashiguchi K, Iwao A, Inoue T et al: Extramedullary plasmacytoma of the rectum arising in ulcerative colitis: case report and review. Gastrointest Endosc 59: 304—307, 2004
- 5) Dolin S, Dewar JP: Extramedullary plasmacytoma. Am J Pathol 32: 83—103, 1956
- 6) Alexiou C, Kau RJ, Dietzfelbiger H et al: Extramedullary plasmacytoma: tumor occurrence and therapeutic concepts. Cancer 85: 2305—2314, 1999
- 7) 豊見山健, 川野幸志, 久高 学ほか: 長期生存が得られた髄外性胃形質細胞腫の1手術例. 臨外

- 55 : 775—778, 2000
- 8) Soutar R, Lucraft H, Jackson G et al : Guidelines on the diagnosis and management of solitary plasmacytoma of bone and solitary extramedullary plasmacytoma. *Clin Oncol* **16** : 405—413, 2004
- 9) 宮川八平, 佐藤千史, 丸茂文昭 : 胃形質細胞腫. 別冊日本臨床, 領域別症候群, 5, 消化管症候群. 上巻. 日本臨床社, 大阪, 1995, p385—387
- 10) 宮崎素彦, 児玉好史, 福島一彦ほか : 胃の原発性形質細胞腫の1治験例. *胃と腸* **8** : 205—208, 1977
- 11) 前田好章, 佐藤裕二, 馬場 基ほか : 回腸原発髄外性形質細胞腫の1例. *日消外会誌* **38** : 342—347, 2005
- 12) Kole AC, Nieweg OE, Pruim J et al : Detection of occult primary tumors using positron emission tomography. *Cancer* **82** : 1160—1166, 1998
- 13) Schirrmeyer H, Buck AK, Bergmann L et al : Positron emission tomography (PET) for staging of solitary plasmacytoma. *Cancer Biother Radiopharm* **18** : 841—845, 2003
- 14) Jadvar H, Conti PS : Diagnostic utility of FDG-PET in multiple myeloma. *Skeletal Radiol* **31** : 690—694, 2002

A Case Report of Laparoscopic Ileocecal Resection for Extramedullary Plasmacytoma originating from the Large Intestine

Takayuki Tajima, Masaya Mukai, Maki Fukasawa, Naoki Yazawa,
Hiroshi Fukumitsu, Masato Nakamura¹⁾ and Hiroyasu Makuuchi²⁾

Department of Surgery and Department of Pathology¹⁾, Tokai University Hachioji Hospital
Department of Surgery, Tokai University Hospital²⁾

A 74-year-old man seen elsewhere for positive occult blood in the stool detected during a municipal health examination was suspected from lower gastrointestinal endoscopy of having malignant lymphoma of the ascending colon and referred to us. Physical examination showed no superficial lymph nodes to be palpable, but barium enema and lower gastrointestinal endoscopy showed a type 1 tumor 2cm in diameter in the ascending colon. Immunohistochemical staining of biopsy specimens yielded a diagnosis of extramedullary plasmacytoma. Fluorodeoxy glucose positron emission tomography (FDG-PET) showed marked accumulated FDG in the lesion but no evidence of metastasis, necessitating laparoscopic ileocecal resection with D2 lymph node dissection. The histopathology of the resected tumor showed diffuse proliferation of plasma cells producing κ chains, with an intramural invasion to the muscularis mucosae. No lymph node metastasis was found. At 18 months after surgery, the man shows no evidence of metastasis or relapse and is being treated as an outpatient. Extramedullary plasmacytomas originating in the large intestine are extremely rare ; with only 5 patients, including ours, having been reported in Japan. Our patient is also considered as the first case of extramedullary plasmacytoma reported anywhere in the world to have been treated by laparoscopic ileocecal resection. This case is discussed with reference to the literature.

Key words : extramedullary plasmacytoma, cecum, laparoscopic ileocecal resection

[*Jpn J Gastroenterol Surg* **43** : 277—281, 2010]

Reprint requests : Takayuki Tajima Department of Surgery, Tokai University Hachioji Hospital
1838 Ishikawa-cho, Hachioji, 192-0032 JAPAN

Accepted : July 22, 2009