

症例報告

## 憩室炎と鑑別が困難であった壁外発育型 S 状結腸 gastrointestinal stromal tumor の 1 例

JA 広島厚生連広島総合病院外科, 同 病理部\*

上神慎之介 今村 祐司 中光 篤志  
香山 茂平 栗田 亜希 藤解 邦生  
羽田野直人 埜越 宏幸 臺丸 裕\*

症例は 74 歳の女性で, 1 か月前より左下腹部痛を自覚するようになり当院消化器内科を受診した。血液検査では炎症反応の上昇を認め, 腹部超音波検査で下行-S 状結腸移行部に結腸と連続した低エコー病変を認めた。CT で S 状結腸の一部が憩室状に拡張し, 壁肥厚と周囲の脂肪織の濃度上昇を認めた。下部消化管内視鏡検査では S 状結腸に易出血性の憩室様の開口部が確認され, 後腹膜膿瘍形成を伴った S 状結腸憩室炎と診断され, 当科紹介となり Hand-Assisted Laparoscopic Surgery (以下, HALS) を施行した。手術所見では S 状結腸から壁外に突出した表面平滑で硬い腫瘤を触知し壁外発育型腫瘍と診断し S 状結腸切除術を施行した。病理組織学的検査にて gastrointestinal stromal tumor (以下, GIST) と診断された。術後経過良好で 14 日目に退院となり, 術後 12 か月再発無く外来にて経過観察中である。本症例は壁外発育型 GIST の中心部が自壊し結腸内腔と交通したため憩室様形態を呈した極めてまれな症例と考えられた。

### はじめに

Gastrointestinal stromal tumor はすべての消化管に高頻度に発生する間葉系腫瘍であるが, 発生部位として結腸はまれである<sup>1)</sup>。今回, 我々は憩室炎と鑑別が困難であった壁外発育型 S 状結腸 GIST の 1 例を経験したので, 文献的考察を加え報告する。

### 症 例

症例: 74 歳, 女性

主訴: 左下腹部痛, 便秘異常

既往歴: 高血圧, 糖尿病にて内服加療中。

現病歴: 1 か月前より左下腹部痛を自覚するようになり, 長時間の座位や便秘時に症状が増悪するため当院消化器内科を受診した。

身体所見: 148cm, 68.2kg, BMI 29.4。体温 36.7℃, 腹部は平坦・軟, 腸蠕動音良好, 腹部に腫

瘍を触知せず, 左下腹部に限局した軽度の圧痛を認めるも筋性防御や反跳痛は認めなかった。

血液検査所見: WBC 9,800/mm<sup>3</sup>, CRP 7.38mg/dl と炎症反応の上昇を認めたが, その他は腫瘍マーカー (CEA, CA19-9) を含め基準範囲内であった。

腹部超音波検査: 下行-S 状結腸移行部において, 結腸後壁に連続する 1.5×2.4cm 大の内部均一な低エコー病変を認め腫瘍性病変が疑われた (Fig. 1)。

CT 検査所見: S 状結腸の一部が憩室状に拡張し壁肥厚を伴っていた。周囲の脂肪織の濃度上昇を認めたが周囲のリンパ節腫大や腹水貯留は認めなかった (Fig. 2a, b)。

下部内視鏡検査: 下行-S 状結腸移行部に憩室様の開口部を認めた (Fig. 3)。

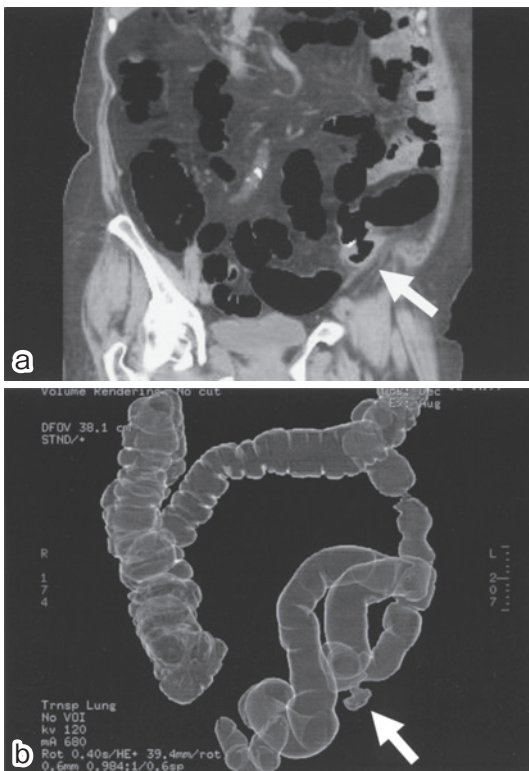
1 か月以上続く腹痛, 炎症反応の上昇, CT での S 状結腸の憩室状拡張と壁肥厚, 周囲脂肪織の濃度上昇を認めたことから, 後腹膜側への膿瘍形成

<2010 年 1 月 27 日受理>別刷請求先: 上神慎之介  
〒738-8503 廿日市市地御前 1-3-3 JA 広島厚生  
連広島総合病院外科

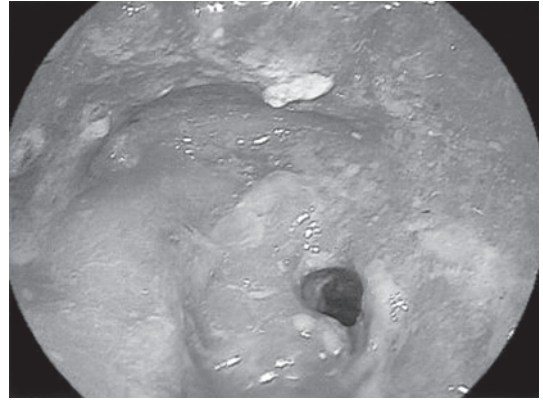
**Fig. 1** Abdominal ultrasonography showed low echoic mass as like as tumor continued to the sigmoid colon.



**Fig. 2** Abdominal CT demonstrated partially enlarged and thickened wall of sigmoid colon (a). Virtual colonoscopy revealed the lesion, connecting to the lumen, such as diverticular disease (b).



**Fig. 3** Colonoscopy showed the aperture at the S-D junction, and the form was such as diverticulum.



を呈した S 状結腸憩室炎と診断した。高血圧，糖尿病，肥満，年齢などの手術リスクを考慮して，まずは輸液と抗菌療法による治療を先行した。炎症反応が改善し，全身状態も落ち着いたため，待機的に HALS を施行した。

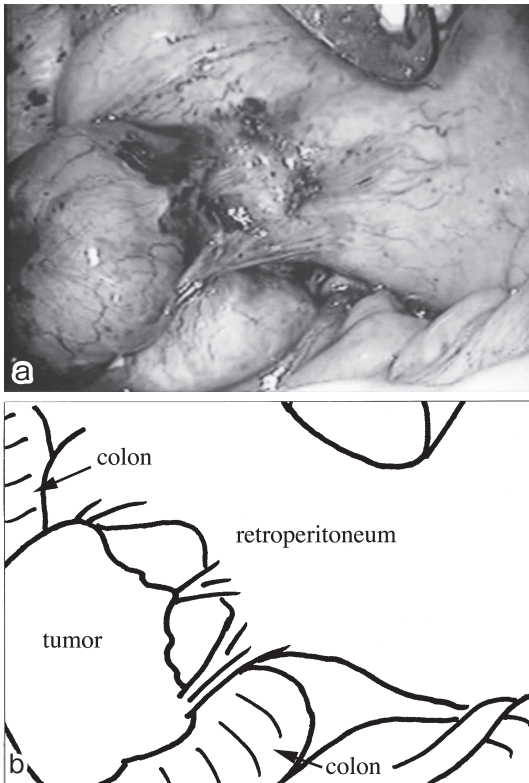
手術所見：下腹部正中に小切開を加え，HALS ポートを装着し気腹，右下腹部に 12mm，左側腹部，左下腹部に 5mm ポートを順次挿入した。鏡視下に腹腔内を観察したが腹側からの観察では病変部は可視域になかった。そこで内視鏡を左下腹部ポートから挿入し，尾側より視野展開して，HALS 操作で外側より S 状結腸の授動を開始したところ，表面平滑で硬い腫瘍性病変を触知した。また一部は後腹膜と癒着していた。手動的に結腸を内側に牽引し，術野を展開して観察することで，後腹膜浸潤を伴う壁外発育型腫瘍と診断し，後腹膜浸潤部を一塊として S 状結腸切除術を施行した (Fig. 4a, b)。

手術摘出標本：3cm の壁外発育型腫瘍で，内部に空洞を形成し結腸内腔と交通していた (Fig. 5)。

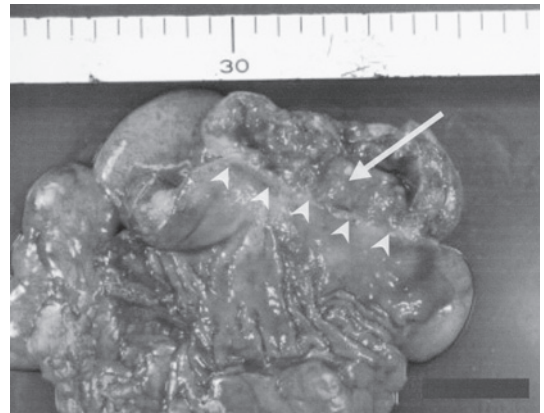
病理組織学的所見：腫瘍は HE 染色では紡錘形の腫瘍細胞で構成され，免疫組織学的検索では c-kit, CD34 陽性，desmin, actin 陰性であり，Rosai 分類の uncommitted type の GIST と診断された。核分裂像は強拡大 50 視野に 3 個認められた (Fig. 6a, b)。

術後経過は良好で，術後 14 日目に軽快退院と

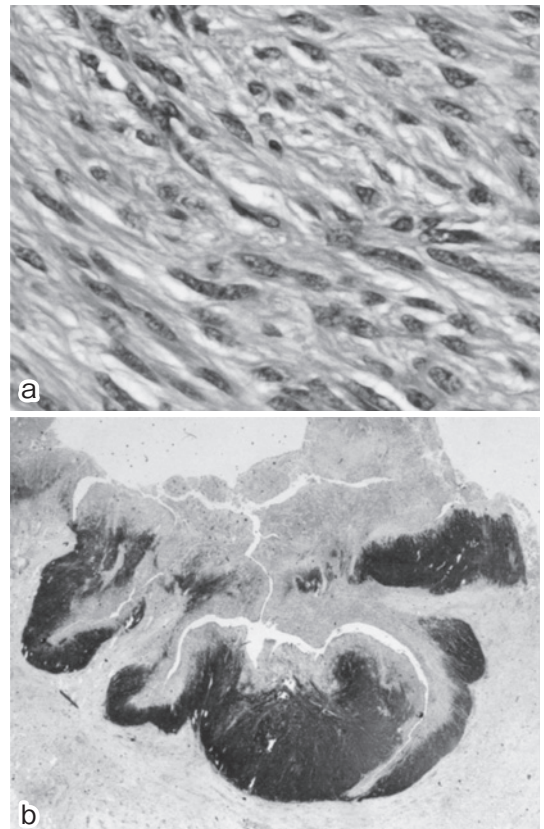
**Fig. 4** Operative findings showed the smooth and hard tumor protruding from the wall of sigmoid colon, suspected partial peritoneum invasion (a). Schema of operative findings (b).



**Fig. 5** The resected specimen showed extensive extraluminal tumor with cavitation (arrow), connecting to the lumen (arrowheads).



**Fig. 6** Microscopic findings demonstrated the tumor was composed of interlacing fascicles of spindle cells (a, H.E  $\times 400$ ). Immunohistochemical staining revealed tumor cells are positive for c-kit (b,  $\times 10$ ).



なった。外来にて経過観察中であるが術後12か月、再発所見は認めていない。

### 考 察

GISTは消化管間葉系腫瘍のうちで最も頻度の高い腫瘍であり、発生部位は胃や小腸が多く、大腸は5%程度である<sup>1)2)</sup>。また、大腸では直腸に頻度が高く、結腸原発はまれである<sup>1)</sup>。Rosai<sup>3)</sup>により免疫組織学的に四つのカテゴリーに分類されたが、原因としてc-kit遺伝子が同定され、カハールの介在細胞(interstitial cells of Cajal)に由来する腫瘍であることが明らかになり<sup>4)</sup>、現在では、一般的に免疫組織学的にc-kit陽性の腫瘍をGISTと定義するのが妥当と考えられている<sup>5)</sup>。自験例も免疫組織学的にc-kit、CD34陽性、desmin、actin陰性でありGISTと診断された。

Table 1 Review of the literature, c-kit positive colon GIST in Japan

No.	Author	Year	Age	Sex	Location	Size (cm)	Clinical symptom	Preoperative diagnosis	Operation	Mitosis	Prognosis	Others
1	Sonoda <sup>6)</sup>	2001	82	F	S	20	Abdominal discomfort	Ovarian tumor	Open laparotomy	5-10/ 10HPF	6M dead	Local recurrence
2	Murakami <sup>7)</sup>	2002	35	F	S	9	Abdominal pain	Ovarian tumor (Perforation)	Open laparotomy (Emergency)	25 < / 50HPF	18M alive	
3	Ogata <sup>8)</sup>	2002	79	F	T	5	Lower abdominal pain	Ovarian tumor, Colon tumor	Open laparotomy (Emergency)	10/10HPF	2M dead	Dissemination
4	Kase <sup>9)</sup>	2002	mid 40's	M	T	6	Abdominal mass	Colon tumor	Open laparotomy	5/50HPF	24M alive	
5	Hanada <sup>10)</sup>	2003	69	F	S	N.D	Lower abdominal pain	Megacolon (Perforation)	Open laparotomy (Emergency)	0	51M alive	
6	Kawabata <sup>11)</sup>	2003	58	F	T	3.3	Abdominal pain, Appetite loss	GIST	none	N.D	5M dead	Dissemination
7	Kurosaka <sup>12)</sup>	2004	67	F	C	2	Lower abdominal pain	Colon Ca.	Open laparotomy	N.D	13M dead (Ca.death)	Complicated Cecum Ca.
8	Uesugi <sup>13)</sup>	2004	45	M	T	3	None	Submucosal tumor	LAC	0	10M alive	
9	Maeda <sup>14)</sup>	2004	50	F	T	3.5	Abdominal pain	Submucosal tumor, Invagination	HALS	3/50HPF	N.D	
10	Kurosaki <sup>15)</sup>	2005	30	F	T	27	Abdominal mass	N.D	Open laparotomy	1-2/ 50HPF	24M alive	24M Local recurrence, Ope.
11	Ono <sup>16)</sup>	2006	57	M	T	2.5	None	Duodenum tumor	Open laparotomy	5/50HPF	N.D	
12	Miyake <sup>17)</sup>	2006	54	F	D	8	N.D	N.D	Open laparotomy	N.D	132M alive	108M Liver metastasis, Ope.
13	Yamaguchi <sup>18)</sup>	2008	46	M	A	9	Rt. lower abdominal pain	Colon Ca. with appendicitis	Open laparotomy (Emergency)	30/50HPF	10M dead	Stump (+), Lymph node (+), 9M Local recurrence
14	Tamagawa <sup>19)</sup>	2009	61	M	C	3.5	Abdominal discomfort	Submucosal tumor, Invagination	LAC	N.D	N.D	
15	Yamagishi <sup>20)</sup>	2009	80	F	A	4	Abdominal pain	Colon tumor, Invagination	Open laparotomy (Emergency)	0	11M alive	
16	Our case		74	F	S	3	Lt. lower abdominal pain	Diverticulitis with abscess	HALS	3/50HPF	11M alive	

M : Male, F : Female, C : Cecum, A : Ascending, T : Transvers, D : Descending, S : Sigmoid, N.D : No described, Ope : Operation, LAC : Laparoscopic assisted colectomy, HALS : Hand assisted laparoscopic surgery, EMR : Endoscopic mucosal resection, Ca : Carcinoma

医学中央雑誌にて1983年から2009年までで「GIST」,「結腸」,「大腸」をキーワードとして検索したところ,我々の検索しえた範囲では,結腸GIST報告例は自験例を含め23例であり,このうち免疫組織学的にc-kit陽性が証明された症例は16例であった<sup>6)~20)</sup>(Table 1). 男性5例,女性11例と女性に多く,発生部位は横行結腸が8例と多かった. 記載のない1例を除くと13例(87%)に

何らかの消化器症状が認められ,腹痛が9例(69%)と最も多かった. 自験例も腹痛で発症したが,機序として壁外発育した腫瘍が粘膜面へも浸潤し,腫瘍の中心部が壊死して消化管内腔と交通したため憩室様形態を呈し,感染により憩室炎症状が引き起こされたものと考えた. これまでに結腸GIST症例において憩室様形態を呈した報告例はなく,自験例は極めてまれな症例と考えられる.

小腸 GIST 症例に同様の報告を 1 例認め<sup>21)</sup>、壁外発育型 GIST では腫瘍内部の壊死により消化管内腔と交通することがあり注意が必要であると思われる。

非手術例<sup>11)</sup>を除く 15 例に手術が施行されていたが、穿孔や腹膜炎疑いで 5 例<sup>7)8)10)18)20)</sup>が緊急開腹手術となっていたほか、癌合併<sup>12)</sup>などの理由で 11 例 (73%) に開腹手術が施行されていた。最近では鏡視下手術症例の報告も認められ、Laparoscopic Assisted Colectomy が 2 例<sup>13)19)</sup>、HALS が 1 例<sup>14)</sup>に施行されており、自験例は HALS の 2 例目であった。鏡視下手術が施行された症例は、自験例を除きすべて管内発育型の粘膜下腫瘍形態を呈しており、こうした症例は鏡視下手術の良い適応であると思われる。自験例では CT で S 状結腸の一部が憩室状に拡張し壁肥厚を伴っていたものの、周囲の脂肪織の濃度上昇も認めため、臨床経過より憩室炎による炎症性変化と術前診断したが、CT で自験例のような腫瘍性病変と憩室炎による炎症性変化の鑑別は困難と思われた。年齢、身体所見、検査所見、既往歴などを考慮して、輸液と抗菌療法による治療を先行し、待機的に手術を施行したが、肥満や炎症による高度癒着を考へ術式は HALS を選択した。病変を直接触知することで後腹膜に浸潤した壁外発育型腫瘍と診断し、腫瘍を一括切除することが可能であり、HALS は有用であった。これまでに壁外発育型 GIST の鏡視下手術報告は認められず、自験例が初と考えられたが、炎症性の癒着と診断して手術を進めていた場合には GIST の遺残、再発の危険性もあり、鏡視下手術を施行する場合には注意深い形態観察を行い、必要と判断すれば開腹手術へ移行するなどして病変を遺残させないことが大切である。

記載のある 13 例のうち腹腔内再発の 2 例<sup>6)18)</sup>、腹膜播種の 2 例<sup>8)11)</sup>に原病死を認めた。自験例は、腫瘍径 3cm、核分裂像は高倍率 50 視野に 3 個と再発の低リスク群であり、一括切除できたため再発の危険性は少ないと考え、現在イマチニブの内服は行わず、外来にて経過観察中である。術後 12 か月、再発徴候を認めていないが、今後も慎重な経過観察が必要と考えている。

## 文 献

- 1) DeMatteo RP, Lewis JJ, Leung D et al : Two hundred gastrointestinal stromal tumors : recurrence patterns and prognostic factors for survival. *Ann Surg* **231** : 51—58, 2000
- 2) Miettinen M, Lasota J : Gastrointestinal stromal tumors-definition, clinical, histological, immunohistochemical, and molecular genetic features and differential diagnosis. *Virchows Arch* **438** : 1—12, 2001
- 3) Rosai J : Stromal tumor. *Ackerman's Surgical Pathology*. Eight Edition. Mosby-year Book, St. Louis, Chicago, 1996, p645—647
- 4) Hirota S, Isozaki K, Moriyama Y et al : Gain-of-function mutation of c-kit in human gastrointestinal stromal tumor. *Science* **279** : 577—580, 1998
- 5) Fletcher CD, Berman JJ, Corless C et al : Diagnosis of gastrointestinal stromal tumors : a consensus approach. *Hum Pathol* **33** : 459—465, 2002
- 6) 園田直子, 片渕秀隆, 新田 慎ほか : 卵巣腫瘍との鑑別を要した S 字状結腸由来の gastrointestinal stromal tumor の 1 例. *日産婦会誌* **53** : 989—993, 2001
- 7) 村上真基, 森川明男, 飯島 智ほか : S 状結腸 gastrointestinal stromal tumor の 1 例. *日消外会誌* **35** : 1717—1720, 2002
- 8) 尾形 徹, 水流重樹, 谷本康信 : 腹膜播種を伴った横行結腸 gastrointestinal stromal tumor の 1 例. *日臨外会誌* **63** : 2743—2746, 2002
- 9) Kase S, Adachi H, Osaki M et al : A case of malignant gastrointestinal stromal tumor of the transverse colon : evaluation of proliferation activity. *米子医誌* **45** : 117—120, 2002
- 10) Hanada M, Takahashi Y, Ikeda K : Gastrointestinal stromal tumor (GIST) of the sigmoid colon presenting as megacolon with fecaloma : a hitherto undescribed presentation caused by diffuse muscular infiltration by GIST. *豊中病医誌* **4** : 83—89, 2003
- 11) 川端英博, 渡辺卓也, 村田陽穂ほか : 結腸原発 gastrointestinal stromal tumor (GIST) の 1 例. *消内視鏡* **15** : 1254—1256, 2003
- 12) 黒阪慶幸, 桐山正人, 西島弘二ほか : 進行結腸癌と盲腸 GIST (Cajal cell type) が衝突していた 1 例. *日本大腸肛門病会誌* **57** : 61—65, 2004
- 13) 上杉尚正, 山口栄一郎, 中村隆志ほか : 横行結腸 gastrointestinal stromal tumor (neural type) の 1 例. *日臨外会誌* **65** : 2159—2163, 2004
- 14) 前田一也, 林 裕之, 細川 治ほか : 腸重積像を呈した横行結腸 GIST の 1 例. *胃と腸* **39** : 700—705, 2004
- 15) 黒崎義隆, 庭野元孝 : 横行結腸原発の Gastrointestinal Stromal Tumor 再発の 1 例. *倉敷中病年報* **68** : 157—162, 2005
- 16) 大野 玲, 小畑 満, 菊池彰史ほか : FDG-PET

- により発見された横行結腸 GIST の 1 例. 日臨外  
会誌 67 : 2419—2423, 2006
- 17) 三宅泰裕, 黒川英司, 加藤健志ほか: 原発巣切除  
9 年後に肝転移をきたした下行結腸原発 GIST の  
1 例. 日臨外会誌 67 : 675—678, 2006
- 18) 山口直哉, 塩見正哉, 東島由一郎ほか: リンパ節  
転移を伴った上行結腸 gastrointestinal stromal  
tumor の 1 切除例. 日消外会誌 41 : 1983—1987,  
2008
- 19) 玉川 洋, 林 勉, 蓮尾公篤ほか: 腸重積を呈  
した盲腸 gastrointestinal stromal tumor の 1 例.  
日消外会誌 42 : 100—104, 2009
- 20) 山岸庸太, 岡田祐二, 石川雅一ほか: 腸重積にて  
発症した上行結腸 gastrointestinal stromal tumor  
の 1 例. 外科 71 : 327—330, 2009
- 21) 友國 晃, 水島恒和, 水野 均ほか: 術前敗血症  
をきたした, 中心壊死を伴う小腸 GIST の 1 例. 日  
鏡外会誌 14 : 193—197, 2009

### A Case of Extraluminal Gastrointestinal Stromal Tumor arising from Sigmoid Colon diagnosed as Diverticulitis

Shinnosuke Uegami, Yuji Imamura, Atsushi Nakamitsu,  
Mohei Kohyama, Aki Kuwada, Kunio Toge,  
Naoto Hadano, Hiroyuki Taogoshi and Yutaka Daimaru\*

Department of Surgery and Department of Pathology\*, JA Hiroshima General Hospital

We report an extremely rare case of extraluminal GIST resembling diverticulitis due to tumor necrosis. A 74-year-old-woman seen for 1 month of lower left abdominal pain was found in blood tests to have an elevated inflammatory response. Abdominal ultrasonography showed a tumor-like low echoic mass in the sigmoid colon. Computed tomography (CT) showed sigmoid colon enlargement and wall thickening, with surrounding fatty tissue density elevation. Colonoscopy detected easily bleeding hole like as diverticulum of the sigmoid colon, suggesting diverticulitis with an intraabdominal abscess. Based on this diagnosis, we conducted hand-assisted laparoscopic surgery (HALS). Operative findings showed a hard smooth-surfaced mass protruding from the sigmoid colon wall and adhering to the retroperitoneum, necessitating sigmoidectomy with partial retroperitoneal excision. The histopathological diagnosis was gastrointestinal stromal tumor (GIST). The postoperative course was uneventful and the woman is doing well without recurrence 12 months after surgery.

**Key words** : extraluminal GIST, colon, hand-assisted laparoscopic surgery

[Jpn J Gastroenterol Surg 43 : 958—963, 2010]

**Reprint requests** : Shinnosuke Uegami Department of Surgery, JA Hiroshima General Hospital  
1-3-3 Jigozen, Hatsukaichi, 738-8503 JAPAN

**Accepted** : January 27, 2010