

腹腔鏡補助下に切除し得た腹腔内デスマイド腫瘍の1例

田村 佳久, 熊本 幸司, 山内 洋介
佐藤 啓太, 藤井 幸治, 高橋 幸二

伊勢赤十字病院 外科

A Case of Intra-Abdominal Desmoid Tumor resected by Laparoscopic Surgery

Yoshihisa TAMURA, Koji KUMAMOTO, Yosuke YAMAUCHI,
Keita SATO, Koji FUJII, Koji TAKAHASHI

Department of surgery, Ise Red Cross Hospital

要 旨

症例は25歳の女性で、第1子出産4カ月後に左上腹部の腫瘍を指摘され、当院を紹介受診した。胃、横行結腸、脾臓に接する径7cm大の充実性腫瘍を認めた。GIST、デスマイド腫瘍、平滑筋腫、神経鞘腫等を鑑別診断として疑い、手術を行った。腹腔鏡補助下に胃、結腸、脾臓の合併切除を施行し、腫瘍を摘出した。摘出標本にて80×75×75mmの境界明瞭、黄白色充実性の腫瘍を認めた。組織学的には紡錘形細胞が錯綜して増殖しているのが認められた。c-Kit, CD34, SMA, S100, desminの免疫染色は陰性であり、デスマイド腫瘍と診断した。術後1年の時点で挙児希望があり、その後術後1年2カ月時点で第2子妊娠となった。妊娠中は2カ月毎に腹部超音波検査でフォローアップしたが、明らかな再発なく無事に出産に至った。現在術後3年2カ月経過したが再発は認めていない。本邦報告例の集計と併せて報告する。

キーワード：デスマイド、腹腔鏡、妊娠

Key Words: Desmoid, laparoscopy, Pregnancy

はじめに

デスマイド腫瘍は組織学的には良性の線維増殖性腫瘍である。しかしながら、浸潤性発育・局所再発を示すことから、臨床的には良悪性中間的軟部腫瘍に位置付けられている¹⁾。

腹壁、腹壁外、腹腔内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く、腹腔内発生は稀とされている²⁾。手術、外傷、妊娠などの既往後や、家族性大腸ポリポーシスがリスク因子として知られている。

今回、妊娠出産後に発生したデスマイド腫瘍に対して腹腔鏡下手術を行い良好な経過を得た症例を経験したので報告する。

症 例

患者：25歳，女性。

主訴：左上腹部の腫瘍自覚。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：第1子出産4カ月後に左上腹部腫瘍を自覚し、近医を受診した。腹部超音波検査で左上腹部に約7cm大の腫瘍を指摘され、当院を紹介受診した。

現症：身長162cm，体重55kg，左肋骨弓下に腫瘍を触知した。

血液生化学検査所見：各種腫瘍マーカーを含め、異常所見は認めなかった。

腹部CT所見：胃，横行結腸，脾臓に接し，圧排する径7cm大の充実性腫瘍を認めた。腫瘍内部

のdensityは均一で、わずかに造影されたが、栄養血管については明らかではなかった。(図1)

MRI所見：腫瘍は、T1強調画像で低信号、T2強調画像で軽度高信号を示した。

上部消化管内視鏡所見：胃体中部大弯後壁に壁外からの圧排所見を認めたが、粘膜面に異常は認めなかった。

以上より、由来は明らかではないが、GIST、デスマイド腫瘍、平滑筋腫、神経鞘腫等を鑑別診断として疑い、手術の方針とした。

本症例は若年女性であり、本人、家族よりできる限り創部を小さくしてほしいとの希望があった。術前検査では隣接臓器への浸潤は明らかでなく、診断および治療を兼ねて腹腔鏡下にて手術を開始した。

手術所見：臍部をカメラポートとし、5ポートで手術を行った。腹腔鏡下に腹腔内を観察すると

胃の大弯背側と横行結腸の間に径7cmの表面平滑な弾性硬の腫瘍を認めた。腫瘍の背側では脾臓と癒着し、浸潤が疑われた。(図2) 腫瘍の前面には大網が広く付着していたことから腫瘍は大網に由来したものと推測された。

腹腔鏡下に胃の部分切除、脾彎曲部結腸の受動を行い、約8cmの小開腹創より創外に腫瘍を引き出した。脾臓との癒着部位は脾尾部の小範囲であり、自動縫合器を使用し、楔状に切除した。横行結腸に関しては合併切除を施行し、最終的に腫瘍を摘出した。

摘出標本：80×75×75mmの境界明瞭、黄白色充実性の腫瘍を認めた。(図3)

病理組織学的検査所見：H.E染色では紡錘形細胞が錯綜して増殖しているのが認められたが、核異型は軽度で、細胞密度も高度ではなく、核分裂像はわずかであった。(図4)

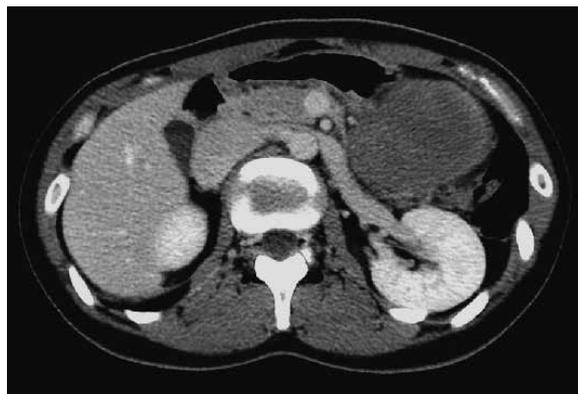


図1 Abdominal computed tomography(CT) showed an enhanced mass near by the stomach

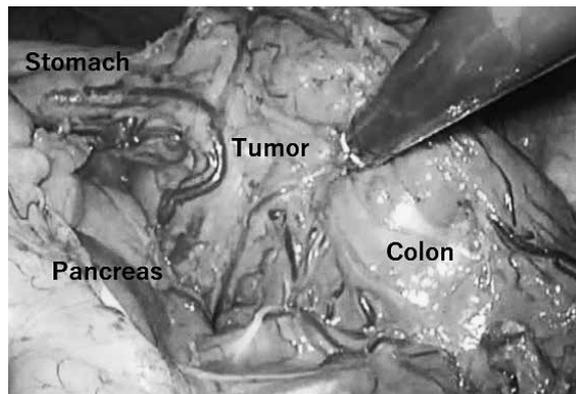


図2 Laparoscopic findings



図3 Resected specimen

The tumor was elastic-firm in consistency and had a smooth surface. The cut-surface was whitish and solid.

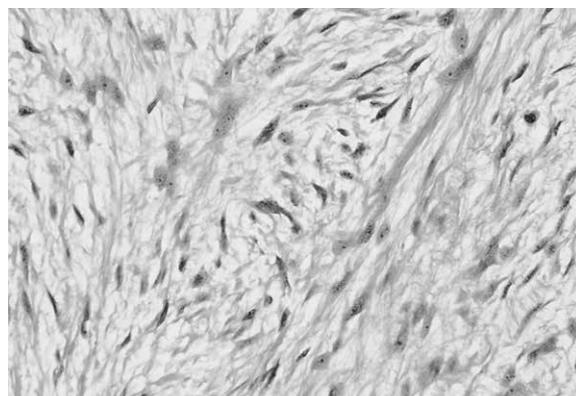


図4 Pathological findings

Hematoxylin and eosin stained sections revealed nodular proliferation of spindle-shaped cells, while mitotic figures and nuclear pleomorphism were inconspicuous(HE staining × 400).

c-Kit, CD34, SMA, S100, desminの免疫染色は陰性であり、デスマイド腫瘍と診断した。

合併切除した胃、横行結腸、膵臓には、腫瘍細胞が直接浸潤していた。

術後経過：術後Clavien-Dindo分類Grade IIの膵液瘻を認めたが、保存的加療で軽快し、第24病日に退院になった。

術後1年の時点で挙児希望があり、その後術後1年2カ月時点で第2子妊娠となった。妊娠中は2カ月毎に腹部超音波検査でフォローアップしたが、明らかな再発なく無事に出産に至った。

現在術後3年2カ月経過したが再発は認めていない。

考 察

今回、我々は胃、横行結腸、膵臓に浸潤するデスマイド腫瘍に対して、腹腔鏡下手術を行い、良好な結果が得られた症例を経験した。デスマイド腫瘍は線維組織腫瘍の一つで、①分化した線維芽細胞の増殖、②増殖細胞間に多量の膠原線維が存在する、③浸潤性の発育形態、④細胞学的悪性所見や著明な核分裂像など悪性所見を認めない、⑤転移はないが局所再発がある、と定義されている³⁾。デスマイド腫瘍は病変の境界が不明瞭で、被膜を有さず周囲組織に浸潤性に発育する傾向があり、遠隔転移はないが、しばしば摘出後の局所再発をきたすという特徴から、新WHO分類では、良悪性中間的軟部腫瘍に位置付けられている²⁾。

発生頻度は100万人中2.4～4.3人程度と言われ、発生部位により腹壁デスマイド腫瘍、腹壁外デスマイド腫瘍、腹腔内デスマイド腫瘍の3型に分類されるが、主に腹壁から発生するものが多く、腹腔内デスマイド腫瘍は8%と言われている⁴⁾。デスマイド腫瘍の発生は、手術などの機械的刺激や、妊娠、エストロゲンの関与が指摘されているが、明確なメカニズムはわかっていない⁵⁾。

女性では妊娠や出産がきっかけとなり、デスマイド腫瘍が発生すると報告されている⁶⁾。本症例では出産後4カ月で腫瘍を自覚しており、妊娠に関連した発症と推測される。男女比では女性、特に生殖年齢女性に発症頻度が高いとされており、しかも、発症したデスマイド腫瘍の発育速度は男性では全年齢層で均等でゆっくりであるが、生殖年齢女性では男性の2倍の発育速度であり、中年

女性では4倍の速度であったとの報告もある⁷⁾。これらの年齢層の女性はエストロゲン優位なホルモン環境にあり、このことがデスマイド腫瘍の発育速度を速めていると考えられている。

本症例では手術後1年の時点で本人、家族より挙児希望があった。妊娠に伴うデスマイド腫瘍の切除後の再発率は13%との報告がある⁸⁾。デスマイド腫瘍切除後の妊娠による再発の可能性については、デスマイド腫瘍切除後に妊娠した患者とデスマイド腫瘍切除後妊娠しなかった患者では無再発生存率に差がないことから、デスマイド腫瘍切除後の妊娠を回避する必要はないとの報告もある⁹⁾。

本症例では本人、家族とよく相談の上で、術後1年2カ月時点で第2子妊娠となった。妊娠中は2カ月毎に腹部超音波検査でフォローアップしたが、明らかな再発なく無事に出産に至ることが可能であった。

本疾患の術前診断では、CT、MRIなどの画像検査が重要になる。画像検査によって腫瘍の存在部位、栄養血管、および周囲組織への浸潤の有無を評価することが治療方針の決定には不可欠と考えられる。造影CTでは様々な造影パターンを示し得るが、多くは境界明瞭で造影効果のある腫瘍として認識される¹⁰⁾。MRIでは、腫瘍の細胞密度と膠原線維の量を反映して不均一な信号を呈し、T1強調画像で低～等信号、T2強調画像で高信号、内部に一部低信号域を含むとしている¹¹⁾。しかしながら、画像検査による術前の質的診断は困難であり、本症例でも確定診断は得られないままに手術の方針とした。

本疾患に対する治療法は、腫瘍の外科的切除が第一選択で、局所再発予防のために、健常組織を含めた十分な切除が必要とされている¹²⁾。近年では腹腔内に発生した様々な腫瘍に対して腹腔鏡下手術を行い良好な結果が得られた報告が多くされている。しかしながら、デスマイド腫瘍に対して腹腔鏡下手術を行った報告は少ない。

本症例では胃、横行結腸、膵臓に浸潤を認めたが、愛護的に腫瘍を操作し、腫瘍を損傷することなく切除し得た。特に判断が難しい膵臓の浸潤部については小開腹で腫瘍を体外に引き出した後に、触診も加えて切離ラインを決定した。医学中央雑誌データベースで「デスマイド」、「腹腔鏡」をキーワードとして、2000年から2020年3月の期間内で

表1 Characteristics of 11 patients with intraabdominal desmoid tumors resected by laparoscopy-assisted surgery, reported in the Japanese literature

Case	Year	Author	Sex	Age	Previous operation	Location	Other organ resection	Size (mm)	Follow up period(month)
1	2006	Akamatsu	M	68	(-)	ascending colon mesentery	colon	70	16
2	2010	Yamakawa	F	21	(-)	pancreas	spleen, pancreas	120	6
3	2013	Wada	M	62	gastrectomy	small intestine mesentery	(-)	30	unknown
4	2014	Hamada	M	70	colectomy	retroperitoneal	(-)	20	unknown
5	2015	Tani	M	54	(-)	stomach	spleen	100	21
6	2017	Kawamura	F	20	(-)	omentum	(-)	60	12
7	2017	Kodaira	M	63	gastrectomy	stomach	(-)	35	24
8	2018	Shimonosono	M	81	colectomy	gastrosplenic ligament	stomach	18	24
9	2019	Matuno	F	45	cholecystectomy	small intestine mesentery	small intestine	55	16
10	2019	Funamizu	M	21	(-)	mesenterium	colon	70	8
11	2019	Watanabe	F	48	(-)	small intestine mesentery	small intestine	75	5

検索したところ、11例の報告があった。7例で合併切除が施行され、全症例無再発であった。比較的大きな合併切除を要する腫瘍でも、詳細な観察のもとに愛護的に切除することで、腹腔鏡下手術が可能であることが示唆された。(表1)

本症例でも腹腔鏡での詳細な観察のもとに、合併切除する範囲を決定することが可能であった。ただし、腹腔鏡補助下で切除したデスマイド腫瘍の報告は比較的少なく、今後も厳重な経過観察が必要と思われる。

今回我々は腹腔鏡補助下に切除したデスマイド腫瘍の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

学会発表

本論文の要旨は第30回日本内視鏡外科学会総会において発表した。

引用文献

- 1) 橋本洋. 新WHO分類 軟部腫瘍について. 病理と臨. 22:114-119 (2004)
- 2) 橋本洋. 軟部腫瘍. 向井清, 真鍋俊明, 深山正久編. 外科病理学II. 第4版. 1511-1596. 東京,

文光堂 (2006)

- 3) Stout AP. Juvenile fibromatoses. Cancer. 7:953-978 (1954)
- 4) Reitamo JJ, Hayry P, Nykyri E, Saxen E. The desmoid tumor. I. Incidence, sex-, age- and anatomical distribution in the Finnish population. Am J Clin Pathol. 77:665-673 (1982)
- 5) Hayry P, Reitamo JJ, Totterman S, Hopfner-Hallikainen D, Sivula A. The desmoid tumor. II. Analysis of factors possibly contributing to the etiology and growth behavior. Am J Clin Pathol. 77:674-680 (1982)
- 6) Shields CJ, Winter DC, Kirwan WO, Redmond HP. Desmoid tumours. Eur J Surg Oncol. 27:701-706 (2001)
- 7) Reitamo JJ, Scheinin TM, Hayry P. The desmoid syndrome. New aspects in the cause, pathogenesis and treatment of the desmoid tumor. Am J Surg. 151:230-237 (1986)
- 8) Fiore M, Coppola S, Cannell AJ, Colombo C, Bertagnolli MM, George S, Cesne AL, Gladly RA, Casali PG, Swallow CJ, Gronchi A, Bonvalot S, Raut CP. Desmoid-type fibromatosis and

- pregnancy: a multi-institutional analysis of recurrence and obstetric risk. *Ann Surg.* **259**:973–978 (2014)
- 9) Cates JM. Pregnancy does not increase the local recurrence rate after surgical resection of desmoid-type fibromatosis. *Int J Clin Oncol.* **20**:617–622 (2015)
- 10) 谷口尚範, 岩間祐基, 杉森智亜紀, 今輩倍敏行, 伏見育嵩, 川崎竜太, 濱中章洋, 野間恵之, 左野明. 腸間膜デスマイド腫瘍の画像診断. *臨放.* **47**:1836–1842 (2002)
- 11) Yamaguchi K, Hirakata R, Maeda S, Kominami T, Kitamura K. Spontaneous isolated intra-abdominal mesenteric fibromatosis. Case report. *Eur J Surg.* **157**:293–296 (1991)
- 12) 松下一之, 坂本薫, 横山健郎. 腸間膜デスマイド. *日臨. 別冊*:181–183 (1996)

