

骨盤内に発生した神経鞘腫の2例

松下 慎¹, 福田 聡子¹, 井上 均¹西村 健作¹, 原 恒男¹, 大橋 寛嗣²¹市立池田病院泌尿器科, ²市立池田病院病理診断科

TWO CASES OF INTRAPELVIC SCHWANNOMA

Makoto MATSUSHITA¹, Satoko FUKUDA¹, Hitoshi INOUE¹,
Kensaku NISHIMURA¹, Tsuneo HARA¹ and Hiroshi OHASHI²¹The Department of Urology, Ikeda Municipal Hospital²The Department of Pathology, Ikeda Municipal Hospital

A 67-year-old man (case 1) and 65-year-old man (case 2) were incidentally found to have a tumor in the retrovesical region. Computed tomography and magnetic resonance imaging demonstrated a solid tumor at the right side of the rectum. 2-Deoxy-2-[fluorine-18] fluoro-D-glucose (FDG) -positron emission tomography revealed uptake at the tumor. Both patients were cured by tumor resection. Histological diagnosis was benign schwannoma. In case 2, it was difficult to diagnose the tumor as schwannoma by imaging studies. We made a histological diagnosis by transrectal needle biopsy of the tumor before the operation. Schwannoma is located mostly in the limbs and the head and neck, but rarely in the intrapelvic cavity. We expect that the transrectal needle biopsy is valuable for diagnosing the retrovesical tumor.

(Hinyokika Kiyo 61 : 397-400, 2015)

Key words : Schwannoma, Intrapelvis

緒 言

神経鞘腫はSchwann細胞から発生する腫瘍であり、頭頸部や四肢に好発するが後腹膜腔や骨盤腔にも稀に発生する。今回われわれは骨盤腔の膀胱後部に発生した神経鞘腫の2例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者1 : 67歳, 男性

主 訴 : 背部痛

既往歴 : 糖尿病, 高血圧

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 背部痛を主訴に前医を受診し、原因精査目的で施行されたCT検査で偶然に骨盤内腫瘍を指摘された。CT検査では背部痛の原因は特定できなかったが自然消失した。骨盤内腫瘍の精査加療目的で2013年8月、当科を紹介受診した。

血液検査所見 : 血算、血液生化学検査では異常を認めなかった。測定した腫瘍マーカー (PSA, CEA, CA19-9, SCC, NSE, IL-2 レセプター) は基準値内であった。

画像検査所見 : 造影CT検査では膀胱後部、直腸右側に境界明瞭で辺縁平滑な5cm大の腫瘍を認めた。全体的に造影効果は乏しいが、一部が強く造影された (Fig. 1a)。MRI検査では腫瘍はT1強調像で低信号、

T2強調像で高信号を示し、造影では一部がring状に造影された。膀胱や前立腺、直腸などの他臓器と連続性は認められなかった (Fig. 1b)。PET-CT検査では淡いFDG集積を認め、SUV maxは2.8で良性腫瘍が疑われた。

経 過 : 検査所見から非臓器由来の良性腫瘍、特に良性神経鞘腫や神経線維腫を疑い、2013年10月に骨盤内腫瘍摘出術を施行した。

手術所見 : 下腹部正中切開で開腹し、骨盤腔に到達した。腫瘍は表面平滑で周囲との癒着は軽度で、剥離は比較的容易であった。手術時間は159分、出血量は300ccであった。

病理所見 : 腫瘍は5cm大で、断面は白色、充実性で線維性被膜を有していた。核がpalisading patternに配列するspindle cellの増生を認めた。核異型は散見されるものの、核分裂像はほとんど認めず、良性神経鞘腫と診断した (Fig. 2)。

術後経過 : 術後経過は良好で、術後11日で退院となった。退院後15カ月経過した現在まで再発を認めていない。

患者2 : 65歳, 男性

主 訴 : 左側腹部痛

既往歴 : 高血圧

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 左側腹部痛を主訴に2014年5月に当科を受診した。後日、原因精査目的で施行した造影CT検査



Fig. 1. a: Abdominal contrast-enhanced CT scan revealed a heterogenous low density mass (arrow) behind the bladder. b: MRI showed that the tumor was high intensity on T2-weighted image, and enhanced like a ring (arrow) with Gd-DTPA. c: PET-CT showed that the tumor was enhanced (SUV max 2.8).

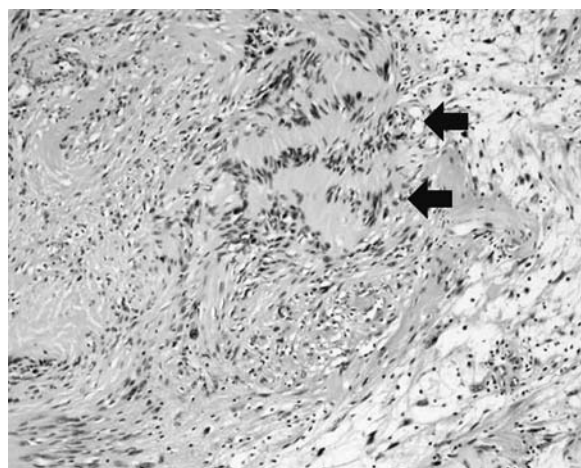


Fig. 2. Spindle cells make a palisading pattern (arrow). Histological examination of the tumor shows benign schwannoma (HE stain $\times 100$).

で偶然に骨盤内腫瘍を認めた。左側腹部痛は受診後数日で自然軽快していた、CT 検査では左側腹部痛の原因は特定できなかった。

血液検査所見：血算、血液生化学検査では異常を認めなかった。IL-2 レセプターは 541 U/ml とやや高値で、PSA は 3.913 ng/ml であった。他の腫瘍マーカー (CEA, CA19-9, AFP) は基準値内であった。

画像検査所見：造影 CT 検査では膀胱後部に右精嚢、直腸と接して辺縁不整な造影効果を有する 4 cm 大の腫瘍を認めた (Fig. 3a)。MRI 検査で腫瘍は T1 強調像で低信号、T2 強調像では不均一な高信号を示し、不均一な造影効果を認めた (Fig. 3b)。右精嚢との境界は不明瞭であった。PET-CT 検査では腫瘍に FDG 集積を認め、SUV max は 4.6 と症例 1 と比較し高値であった。骨盤内腫瘍以外に有意な FDG 集積は認めなかった。

経過：検査所見から非臓器由来の悪性腫瘍か精嚢癌を疑い、確定診断目的で 2014 年 6 月に超音波ガイド

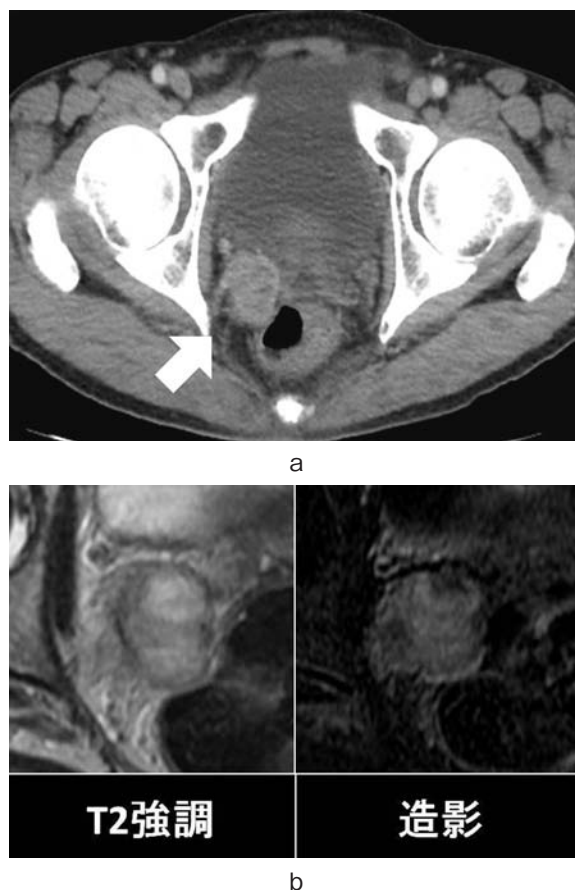


Fig. 3. a: Abdominal contrast-enhanced CT scan revealed a high density mass (arrow) behind the bladder. The border of the mass was unclear. b: MRI showed that the tumor was heterogeneously high intensity on T2-weighted image, and irregularly enhanced with Gd-DTPA. c: PET-CT showed that the tumor was enhanced greater than the tumor in case 1 (SUV max 4.6).

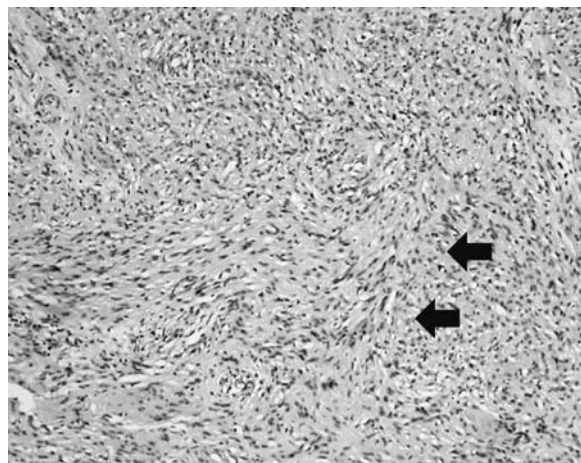


Fig. 4. Spindle cells make a palisading pattern (arrow). Cell density is higher than Fig. 2. Histological examination of the tumor shows benign schwannoma (HE stain $\times 100$).

下経直腸的針生検を施行した。経直腸超音波検査で前立腺に癌を疑う領域を認めたため、同時に前立腺針生検も施行した。生検の結果、骨盤内腫瘍は神経鞘腫と診断し、さらに前立腺からは Gleason score 4+4 の腺癌が検出された。2014年8月に骨盤内腫瘍摘出術と前立腺全摘除術を同時に施行した。

手術所見: 下腹部正中切開で開腹し、骨盤腔に到達した。腫瘍と直腸間の剥離は容易であったが、右精嚢とは癒着していたため、右精嚢は腫瘍と合併切除した。前立腺全摘除術と併せて手術時間は336分、出血量は2,080 ccであった。

病理所見: 腫瘍は4 cm大で、断面は白色、充実性であった。核が palisading pattern に配列する spindle cell の増生を認めた。精嚢との境界は明瞭であった。症例1と比較し細胞密度は高いが、核分裂像はほとんど認めず、良性神経鞘腫と診断した (Fig. 4)。前立腺組織は前立腺癌、pT2a, Gleason score 4+3 と診断した。

術後経過: 術後経過は良好で術後11日で退院となった。退院後5カ月経過した現在まで神経鞘腫、前立腺癌のいずれも再発を認めていない。

考 察

神経鞘腫は schwann 細胞から発生する腫瘍であり、多くは良性神経鞘腫であるが、悪性神経鞘腫も7%程度認められる¹⁾。体幹や四肢の神経に沿って発生することが多く、頭頸部 (44.9%)、四肢 (32.6%) に好発し、骨盤内や後腹膜腔といった泌尿器科領域での発生率は1.0%と稀である²⁾。一方、本症例のような膀胱後部に発生した腫瘍では神経鞘腫は比較的多く、加藤らの報告によると膀胱後部腫瘍135例中に神経鞘腫は18例 (13.3%) と最も高い比率を占めている³⁾。そ

のため、膀胱後部に腫瘍を認めた際は常に神経鞘腫を鑑別に挙げるべきである。しかし、骨盤内発生の神経鞘腫では尿閉や排便障害といった、増大した腫瘍による隣接臓器への圧迫症状をきたす⁴⁾ことはあるものの、神経鞘腫には特異的な臨床症状はなく、血液検査でも特徴的な所見はない。また、画像検査所見では境界明瞭な腫瘍で嚢胞変性を伴うことが多く、稀に石灰化や出血の像を呈することもあるとされている^{5,6)}。CT 検査では low density で内部不均一な腫瘍像を呈し、MRI 検査では T1 強調像で低から中信号、T2 強調像で高信号を示すことが多い。造影では一定のパターンが認められないが、リング状の増強効果は神経鞘腫を示唆する所見とされている。しかし、嚢胞変性は神経鞘腫と鑑別を要する肉腫などでも一般的に認められる所見であり、他の所見も神経鞘腫に特異的な所見とは言い難い⁶⁾。そのため、画像検査所見により神経鞘腫を診断することは容易ではなく、腫瘍生検や摘出標本の組織学的所見により初めて診断される症例が多い⁷⁾。また、FDG PET検査は神経鞘腫を始めたとする神経原性腫瘍の良悪の鑑別に有用と報告されていて、悪性で有意に SUV max が高値になり、SUV max が4.8以上であれば悪性を疑う必要がある⁸⁾。しかし、軟部組織腫瘍の中には悪性であるにも関わらず SUV max が低い腫瘍もあり、神経鞘腫の鑑別診断に用いることは難しい。

神経鞘腫の治療は一般に化学療法や放射線治療は無効とされ、被膜を含めた外科的完全切除が第1選択と考えられている。しかし、骨盤内に発生した神経鞘腫摘出では狭小な骨盤腔内での手術操作を強いられ、さらに直腸や尿管といった隣接臓器損傷や、骨盤内神経損傷による膀胱直腸障害などの重篤な合併症を来たしう⁹⁾ため、腫瘍のサイズや周囲との癒着によって外科的完全切除が困難な症例も存在する¹⁰⁾。一方で良性例では再発率はきわめて低いとの報告¹¹⁾もあり、術前に神経鞘腫の診断が得られ、かつ FDG-PET 検査により良性腫瘍が疑われた症例では、切除術を回避し経過観察を行う、剥離困難な部分は被膜を残して腫瘍核出術にとどめるなどの合併症のリスクを考慮した柔軟な対応が望まれる。

本報告の2症例では、CT 検査、MRI 検査ではそれぞれ画像所見は異なっていたが、組織診断は良性神経鞘腫であった。これらの2症例から神経鞘腫の画像検査所見の多様性、そして画像診断の困難さがうかがわれた。本症例では重篤な合併症なく腫瘍の完全切除が可能であったが、外科的完全切除が困難と予想される症例では術前生検での神経鞘腫の組織診断と FDG-PET 検査での良悪性の予測を組み合わせることで、経過観察や腫瘍核出術が選択可能になる場合もある。しかし、佐藤らの報告によると、本邦において骨盤内

神経鞘腫で術前生検を施行されている症例は135例中6例と非常に少ない⁷⁾。骨盤内深部の腫瘍に対する生検では組織採取自体が困難で、さらに血管や他臓器損傷のリスクを伴うため、適応を慎重に判断しなければならない。術前生検が施行される症例が約4%と非常に少ないことは、実際にはそのような理由で生検が困難であった症例が多いことを反映しているのかもしれない。一方、骨盤内腫瘍の内でも本症例のような膀胱後部発生の腫瘍では、泌尿器科で施行頻度の高い超音波ガイド下経直腸的針生検で比較的簡便に組織採取が可能である。

生検施行の有無に関して2症例を検討すると、症例1では画像検査で良性神経鞘腫を疑い、患者が摘出を希望され、手術合併症のリスクは低いと判断したため、術前に組織診断をつけるメリットは少ないと考え生検は施行しなかった。症例2では画像検査で組織型の予測が困難であったため、術前に生検を施行し神経鞘腫と診断した。本症例では前立腺癌も同時に認めたため、前立腺全摘除術と骨盤内腫瘍摘出術を施行したが、骨盤内腫瘍に関しては経過観察も可能であった。ただし、FDG-PET検査でSUV maxが4.6とやや高値であったため悪性神経鞘腫の可能性を考慮し、第一に外科的切除を勧めるべきであろう。症例2のように画像検査で組織型を予測しがたい膀胱後部腫瘍において、経直腸的針生検は治療方針を決定するうえで非常に有用であると考えられる。

結 語

骨盤内、膀胱後部に発生した神経鞘腫の2例を経験した。膀胱後部腫瘍の治療方針の決定にはPET検査と超音波ガイド下経直腸的針生検の併用が有用と考えられた。

本論文の要旨は第228回日本泌尿器科学会関西地方会で発

表した。

文 献

- 1) Kim DH, Murovic JA, Tiel RL, et al.: A series of 397 peripheral neural sheath tumors: 30-year experience at Louisiana State University Health Science Center. *J Neurosurg* **102**: 246-255, 2005
- 2) Gupta D, Brasfield RD, Strong EW, et al.: Benign solitary schwannomas (neurilemmomas). *Cancer* **24**: 355-366, 1969
- 3) 加藤 誠, 井上和彦, 安藤 裕: 膀胱後部に発生した神経鞘腫の1例. *名古屋病紀* **10**: 125-129, 1987
- 4) 寺西 太, 成田 洋, 保里恵一, ほか: 膀胱後部神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* **61**: 2774-2779, 2000
- 5) 桑島成子: (脊髄) 神経鞘腫. *臨床画像* **30**: 749-758, 2014
- 6) Hughes MJ, Thomas JM, Fisher C, et al.: Imaging features of retroperitoneal and pelvic schwannomas. *Clin Radiol* **60**: 886-893, 2005
- 7) 佐藤雄生, 平田裕久, 村山弘之, ほか: 術前診断した骨盤内神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* **72**: 2730-2734, 2011
- 8) Nose H, Otsuka H, Otomi Y, et al.: Correlations between F-18 FDG PET/CT and pathological findings in soft tissue lesions. *J Med Invest* **60**: 184-190, 2013
- 9) 旦尾嘉宏, 一松啓介, 伊藤崇敏, ほか: 骨盤内後腹膜腔に発生した神経鞘腫の1例. *泌尿器外科* **24**: 679-682, 2011
- 10) 鈴木裕一郎, 杉山尚樹, 岡本亜希子, ほか: 骨盤腔に発生した巨大神経鞘腫の1例. *泌尿紀要* **56**: 581-583, 2010
- 11) 阿部元輝, 中谷敦幾, 堀口祐司, ほか: 巨大後腹膜神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* **61**: 1325-1331, 2000

(Received on March 20, 2015)
(Accepted on June 5, 2015)