

## 膀胱原発神経鞘腫の1例

松本 吉隆<sup>1</sup>, 和久 夏衣<sup>1</sup>, 河合 弘二<sup>1</sup>, 池田 篤史<sup>1</sup>  
木村 友和<sup>1</sup>, 石塚竜太郎<sup>1</sup>, 小島 崇宏<sup>1</sup>, 末富 崇弘<sup>1</sup>  
常樂 晃<sup>1</sup>, 宮崎 淳<sup>1</sup>, 坂下 麻衣<sup>2</sup>, 西山 博之<sup>1</sup>

<sup>1</sup>筑波大学医学医療系腎泌尿器外科学 (主任教授: 西山博之)

<sup>2</sup>筑波大学医学医療系病理診断科

### A CASE OF PRIMARY SCHWANNOMA OF THE URINARY BLADDER

Yoshitaka MATSUMOTO<sup>1</sup>, Natsui WAKU<sup>1</sup>, Koji KAWAI<sup>1</sup>, Atsushi IKEDA<sup>1</sup>,  
Tomokazu KIMURA<sup>1</sup>, Ryutaro ISHITSUKA<sup>1</sup>, Takahiro KOJIMA<sup>1</sup>, Takahiro SUETOMI<sup>1</sup>,  
Akira JORAKU<sup>1</sup>, Jun MIYAZAKI<sup>1</sup>, Mai SAKASHITA<sup>2</sup> and Hiroyuki NISHIYAMA<sup>1</sup>

<sup>1</sup>The Department of Urology and Andrology, Doctoral Program in Clinical Sciences,  
Graduate School of Comprehensive Human Sciences, University of Tsukuba

<sup>2</sup>The Department of Pathology, Doctoral Program in Clinical Sciences,  
Graduate School of Comprehensive Human Sciences, University of Tsukuba

A 68-year-old woman presented with a bladder tumor. She was asymptomatic, and the tumor was incidentally detected with radiological imaging performed during treatment of cervical cancer. Magnetic resonance imaging and computed tomography revealed a solitary submucosal tumor located in the anterior wall of the urinary bladder, with homogeneous contrast enhancement. Cystoscopy showed a submucosal tumor covered by normal mucosa. A paraganglioma was considered in the differential diagnosis, but symptoms suggesting hypercatecholaminemia were not apparent. Moreover, she did not have a family history or symptoms associated with neurofibromatosis-1 (NF-1). She underwent partial cystectomy with a preliminary diagnosis of submucosal bladder tumor. Histopathological diagnosis confirmed a schwannoma arising from the bladder wall. She was followed up without intravesical recurrence or metastases for 6 months. In the literature, only 12 cases of bladder schwannoma have been reported. There was no reported family history or symptoms associated with NF-1 in any of the cases. Although the number of cases is limited, literature review showed a favorable prognosis for bladder schwannoma with local tumor resection in patients without NF-1.

(Hinyokika Kiyo 63 : 323-328, 2017 DOI: 10.14989/ActaUrolJap\_63\_8\_323)

**Key words :** Urinary bladder, Schwannoma

### 緒 言

膀胱壁から発生する良性の間質性腫瘍は稀であり、最も多いとされる平滑筋腫も膀胱腫瘍全体の約0.5%に過ぎない<sup>1)</sup>。神経原性の膀胱腫瘍としてはカテコラミン産生能を持つ傍神経節腫が最も多く、より稀な疾患である膀胱神経線維腫は主に神経線維腫症1型(NF-1; レックリングハウゼン病)の患者に発生する<sup>2)</sup>。一方で神経鞘腫(schwannoma; シュワン細胞腫)は四肢、頭頸部の皮下腫瘍としてよく見られる良性腫瘍であるが、膀胱に原発することはきわめて稀であり、海外本邦を含めて文献上12例が報告されているに過ぎない<sup>3-13)</sup>。今回、われわれは膀胱原発神経鞘腫を経験したので文献的考察を加え報告する。

### 症 例

患 者 : 68歳, 女性

契 機 : 膀胱腫瘍疑い

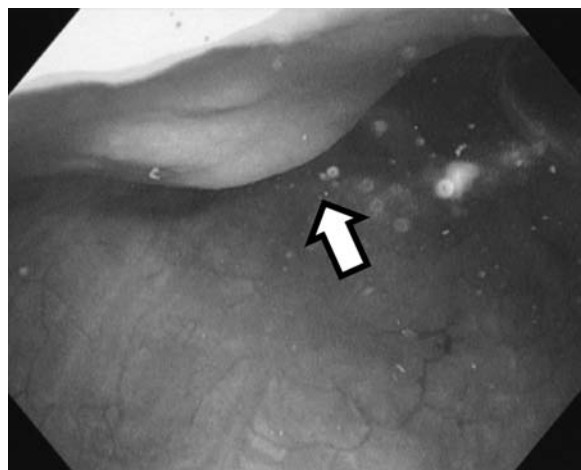
既往歴 : 子宮頸癌 (ⅢB 期) に対して放射線療法  
生活歴 : 喫煙なし, 飲酒なし。

家族歴 : 子宮頸癌 (妹)。神経線維腫症の罹患者なし。

現病歴 : 2015年9月から子宮頸癌治療目的に当院婦人科受診。放射線療法施行後のMRIで約8mmの膀胱粘膜下腫瘍が指摘され、当科に紹介された。治療前の画像所見は膀胱が虚脱しており、腫瘍の指摘が困難であった。また、遠隔転移評価のためPET-CTを施行したが膀胱壁に所見は認められなかった。

初診時現症 : 血圧 120/74 mmHg, 脈拍 72 bpm, 特記事項なし。動悸, 発汗, 血圧上昇などのカテコールアミン産生異常を疑う症候はなし。カフェ・オレ斑, 皮下結節などの明らかな皮膚病変は認められない。

膀胱鏡検査 : 膀胱前壁右側に粘膜下腫瘍を疑う隆起あり。膀胱粘膜に異常を認めなかった (Fig. 1)。



**Fig. 1.** Cystoscopy. Tumor (arrow) was covered by normal mucosa.

この時点では子宮頸癌に対して放射線照射後の補助免疫療法として丸山ワクチンが投与中であったため、しばらく経過観察して、2016年3月に再評価した。

画像所見：単純CT (Fig. 2A) で膀胱前壁右側に膀胱壁と等濃度を示し、造影CT (Fig. 2B) で内部が均一に造影される長径8 mm 大の壁内腫瘍を認めた。腫瘍は類円形で境界明瞭であった。MRI では、T1 強調画像 (Fig. 2C) においては膀胱壁と等信号を示し、T2 強調画像 (Fig. 2D) においては腫瘍の内部は比較的低信号を示し、拡散強調画像 (Fig. 2E) で明瞭な高信号を示した。造影MRI (Fig. 2F) では早期から強く造影され血管に富む粘膜下腫瘍であることが示唆された。以上より傍神経節腫や転移性膀胱腫瘍が画像診断上の鑑別疾患として指摘された。

血液生化学検査・尿検査：血算、生化学検査、尿検査で異常を認めず、尿細胞診は陰性であった。また、内分泌検査では血漿アドレナリン 30 pg/ml (基準値 170 pg/ml)、ノルアドレナリン 358 pg/ml (基準値 570 pg/ml)、ドーパミン  $\leq 20$  pg/ml (基準値 30 pg/ml) とすべて基準値内であった。

MRI 画像と内分泌検査から傍神経節腫の可能性は低いと考え、MIBG シンチグラフィは施行しなかった。

免疫療法を一時中断することは問題ないとの婦人科側の見解が得られたため、治療および組織学的診断を目的として2016年7月に腫瘍切除術を予定した。術式としては、膀胱外側に突出して存在したためTURでは穿孔のリスクがあること、および完全切除がより確実に行えることなどから膀胱部分切除術を選択した。

手術所見：全身麻酔、載石位にて手術を施行。下腹部正中切開で膀胱前腔に到達。左右膀胱側腔を展開した。膀胱前面の脂肪を膀胱壁から剥離すると、膀胱前面右側に1 cm 大の腫瘍を触知した。膀胱周囲の剥離を進めて、腫瘍の周囲5 mm ほどのマージンを確保

し、腫瘍を摘出した。摘出の際に膀胱粘膜切除を伴う膀胱部分切除を行った。出血量は115 ml であり手術時間は2時間27分であった。

病理所見：肉眼的に、粘膜下において境界明瞭な17 mm 大の白色調充実性腫瘍が認められた。組織学的に、固有筋層において、紡錘形の腫瘍細胞が錯綜して束状に増殖していた。核の柵状配列がみられ、腫瘍細胞が密に増殖しているAntoni A 領域と浮腫状・粘液腫状の間質を有し、細胞密度が低いAntoni B 領域が認められた。免疫組織化学による検討では腫瘍細胞はS-100 陽性だった (Fig. 3)。以上より神経鞘腫と診断された。

術後経過：術後6カ月の経過観察で再発を認めていない。

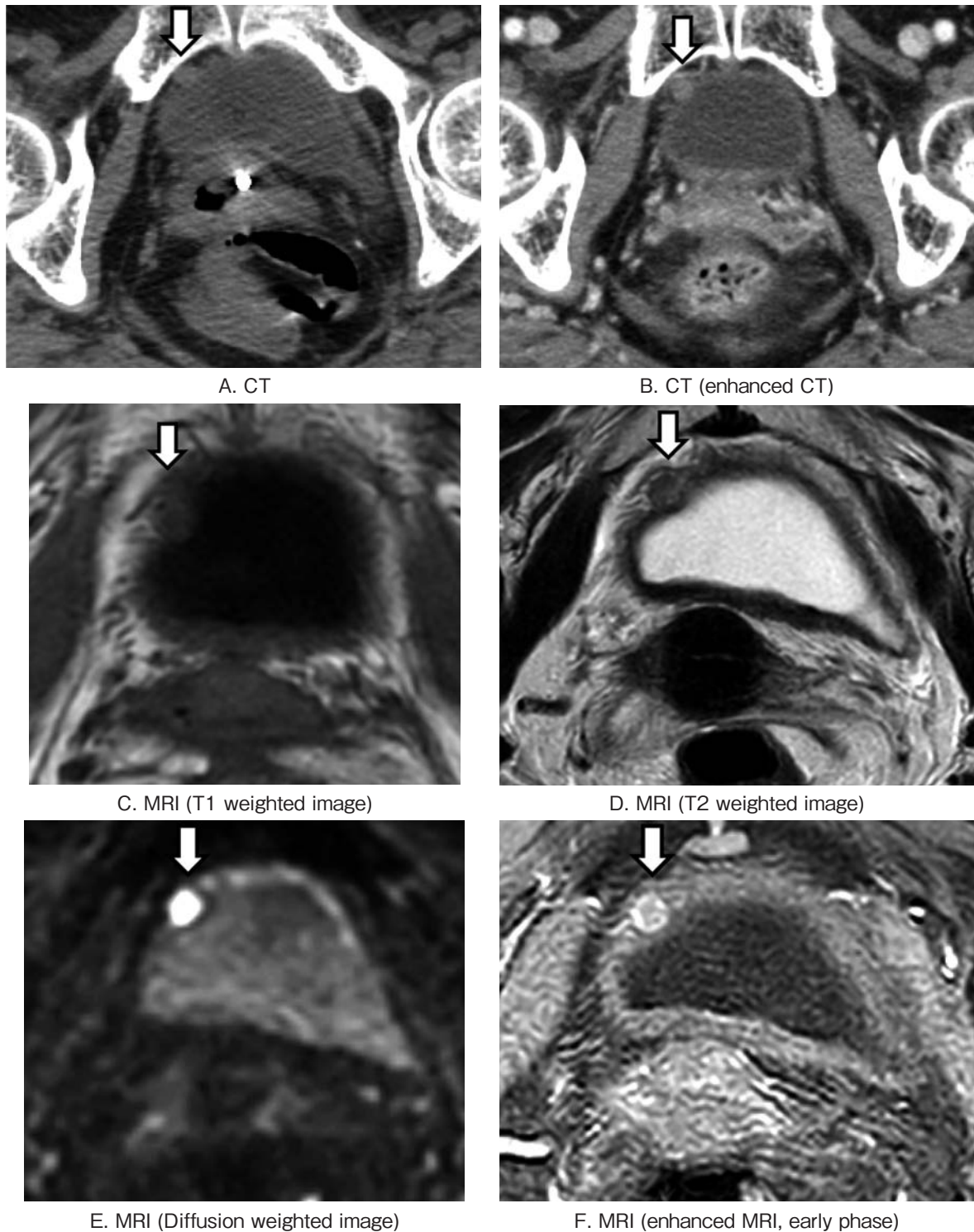
## 考 察

神経鞘腫は四肢、頭頸部の皮下腫瘍としてよく見られる良性腫瘍であるが、泌尿器科領域では後腹膜原発神経鞘腫が散発的に報告されているものの後腹膜腫瘍全体の1%に過ぎないとされている<sup>14)</sup>。さらに稀ではあるが腎腫瘍<sup>15)</sup>および陰嚢内腫瘍<sup>16)</sup>としての報告もある。

今回、われわれは膀胱神経鞘腫を経験したが、文献としての報告例はTable 1に示すように12例に留まっている<sup>3-13)</sup>。

これら12例の臨床像 (Table 1) について発症年齢としては50~60歳代が最多だが若年例もある。後述する膀胱神経線維腫との最も大きな相違として自験例も含めてNF-1の合併例がないことが特筆される。腫瘍径としては3~5 cm 大が多いが、自験例のように1 cm 前後の小さな腫瘍も報告されている。自覚症状は血尿が最多だが非特異的なものも多い。粘膜下腫瘍である神経鞘腫で血尿を来す理由は明らかではないが、平滑筋腫、傍神経節腫、悪性リンパ腫などの膀胱粘膜下腫瘍において血尿は比較的高い頻度で出現することが報告されている<sup>17-19)</sup>。手術術式としては大部分の症例で自験例と同様に膀胱部分切除が選択されており再発を認めた症例はない。症例数が少なく観察期間が十分ではないことに注意が必要であるが、低率ながら悪性腫瘍としての転帰をとる可能性のある傍神経節腫瘍や神経線維腫と対照的に膀胱神経鞘腫はNF-1の合併がない限り基本的に良性腫瘍と考えられる。

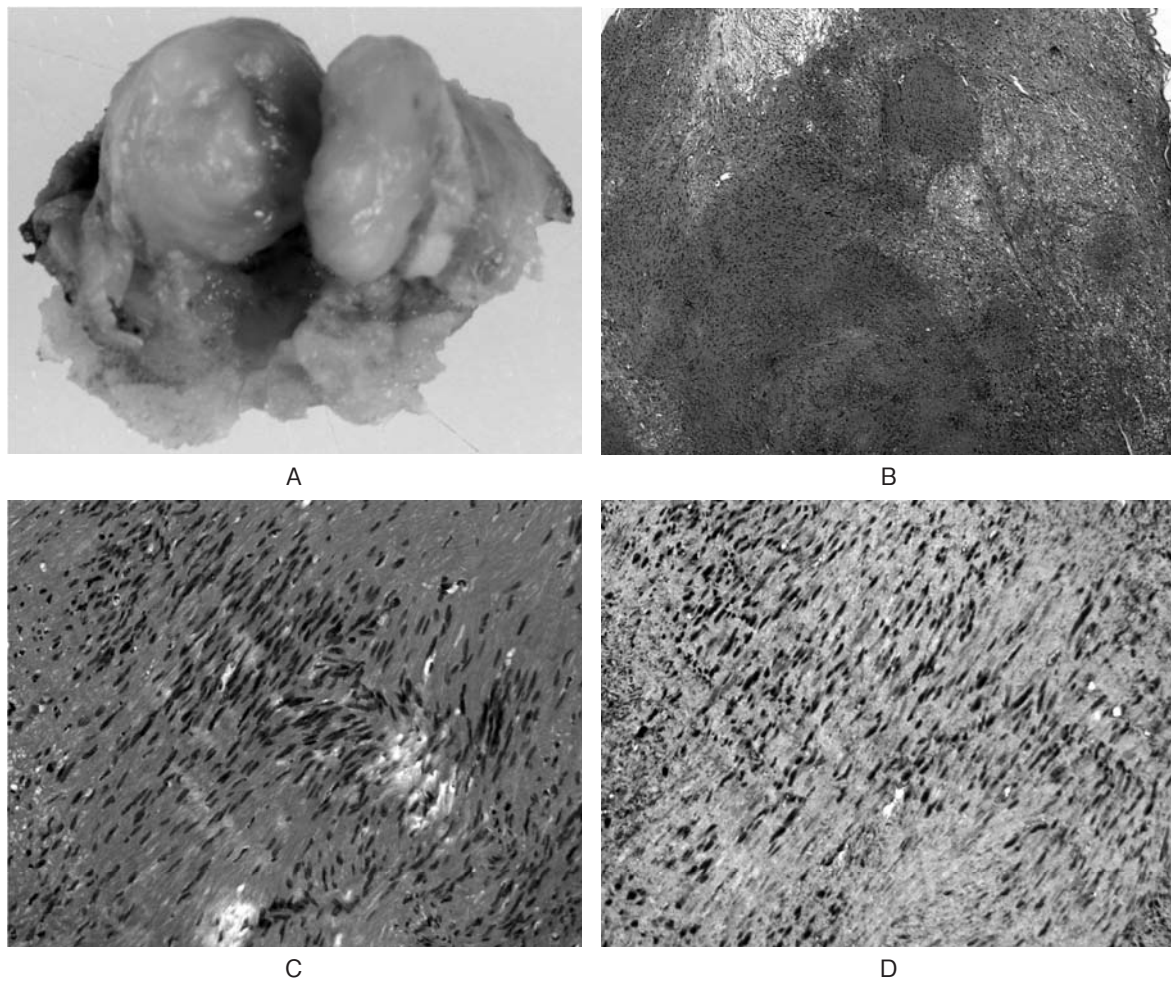
膀胱神経鞘腫自体、きわめて稀であるため自験例では術前診断は膀胱粘膜下腫瘍に留まり、傍神経節腫瘍および転移性膀胱腫瘍が画像上疑われた。一般に膀胱壁から発生する良性の間質性腫瘍は稀であり、その術前診断は容易ではないが、多くは粘膜下腫瘍あるいは膀胱外に突出して発育する腫瘍であり粘膜下腫瘍と診断する点では画像診断法としてMRIが有利とされて



**Fig. 2.** MRI and CT. Axial view on plain CT. CT imaging showed a solid mass at the right anterior wall of the urinary bladder. The CT level was identical to that of bladder wall (A: arrow). Enhanced CT showed hyperenhancement of the tumor. The inside is contrasted uniformly (B: arrow). T1 weighted MRI showed hypointense tumor (C: arrow). T2 weighted MRI showed hypointense tumor (D: arrow). Diffusion weighted MRI showed hyperintense tumor (E: arrow). Enhanced MRI showed early hyperenhancement of the tumor (F: arrow).

いる。Table 2 に主な膀胱粘膜下良性腫瘍のMRI 所見をまとめた<sup>1,20)</sup>。最も多い平滑筋腫は典型的には子宮筋腫に類似した T1 および T2 強調画像所見であるとされている。血管腫は T2 強調画像で著明な高信号で

あり、豊富な血流を示唆する造影効果を示すとされ、また膀胱鏡所見が診断に有用とされている。脂肪腫では MRI あるいは CT での脂肪の存在の確認が有用である。一方で、神経原性の神経鞘腫、神経線維腫およ



**Fig. 3.** Histopathological findings of tumor. Macroscopic findings. A. The tumor was 17 mm in diameter and well-circumscribed. Microscopic findings. B. H & E stain,  $\times 40$ . Two architectural patterns were found: Antoni A pattern composed of compact spindle cells and loose-textured Antoni B pattern. C. H & E stain,  $\times 200$ . The tumor was composed of spindle cells which had moderate quantities of eosinophilic cytoplasm without discernible cell borders and modest nuclear atypia. D. Immunostain for S-100 protein,  $\times 200$ . The tumor was diffusely and strongly immunoreactive with S-100 protein.

**Table 1.** Previously reported cases of schwannoma of the urinary bladder

| 発表年  | 筆者        | 年齢 | 性別 | 大きさ (mm) | 症状           | 治療     | 再発 | 経過観察期間 (月) |
|------|-----------|----|----|----------|--------------|--------|----|------------|
| 1993 | Ng        | 88 | F  | 200      | 尿失禁          | 生検     | なし | N/A        |
| 1997 | Brown     | 19 | F  | 10       | 頻回の尿路感染症     | 膀胱部分切除 | なし | 18         |
| 1998 | Cummings  | 58 | F  | 45       | 下腹部痛         | 膀胱部分切除 | なし | 36         |
| 2005 | Geol      | 35 | M  | 35       | なし           | 膀胱部分切除 | なし | 12         |
| 2008 | Wang      | 69 | M  | N/A      | 血尿, 頻回の尿路感染症 | 膀胱部分切除 | なし | 48         |
| 2008 | Wang      | 56 | F  | N/A      | N/A          | 膀胱部分切除 | なし | 48         |
| 2008 | Gafson    | 52 | F  | 70       | 頻尿, 腹痛       | 膀胱部分切除 | なし | 1          |
| 2010 | Fukui     | 50 | F  | 40       | なし           | 膀胱部分切除 | なし | 9          |
| 2012 | Mosier    | 31 | M  | 17       | 血尿, 腹痛       | 膀胱部分切除 | なし | 8          |
| 2014 | Ohtake    | 46 | M  | 19       | 下腹部痛         | 膀胱部分切除 | なし | 2          |
| 2014 | Mazdar    | 50 | F  | 58       | 血尿, 頻尿       | TURBT  | なし | 5          |
| 2016 | Srinivasa | 45 | M  | 16       | 血尿           | 膀胱部分切除 | なし | 9          |
|      | This case | 67 | F  | 17       | なし           | 膀胱部分切除 | なし | 5          |

び傍神経節腫瘍に関しては T1, T2 強調画像所見では基本的に鑑別は困難である。ただ、蔓状型神経線維腫

では T2 強調画像で中心部が低信号, 辺縁域が高信号となる (target sign) ことがあり, 傍神経節腫瘍では

**Table 2.** Reported MRI findings of benign submucosal tumor of the urinary bladder

|       | T1 強調画像 | T2 強調画像             | 造影所見     | その他               |
|-------|---------|---------------------|----------|-------------------|
| 平滑筋腫  | 中信号     | 低信号                 | 不均一な造影効果 | 子宮筋腫と類似           |
| 血管腫   | 低～中信号   | 著明な高信号              | 良好な造影効果  |                   |
| 脂肪腫   | 高信号     | 高信号                 | 造影効果は乏しい | In-out phase で低信号 |
| 神経鞘腫  | 低信号     | 高信号が多い              | 不均一な造影効果 |                   |
| 神経線維腫 | 低信号     | 辺縁高信号 (target sign) | 辺縁が濃染    |                   |
| 傍神経節腫 | 低信号     | 中～高信号               | 良好な造影効果  | リング状の石灰化          |

リング状の石灰化が認められる場合もある<sup>20)</sup>。したがって、これらの腫瘍の術前診断は下記のような他の臨床情報を加味した総合判断が必要になる。

神経原性膀胱腫瘍としては傍神経節腫瘍が最も多く Henderson らは2015年の時点での PubMed 検索で143例の報告があったとしている<sup>2)</sup>。著者らは肉眼的血尿、高血圧およびカタコラミン放出に伴う発汗や動悸などの排尿後症候が重要であり、おのおの51、45および40%の症例で認めたとしている。また約10～15%の症例で悪性腫瘍としての経過をたどったとしている。膀胱神経線維腫に関しては NF-1 の合併率が高く、Cheng らの集計（1999年）では49例中38例（78%）に NF-1 の合併が認められたとされる<sup>21)</sup>。今回検索した範囲では膀胱神経鞘腫で NF-1 を伴ったとする報告例はなかった。

## 結 語

文献上13例目と考えられる膀胱神経鞘腫について報告した。膀胱に発生する神経原性の腫瘍は稀であるが、傍神経節腫瘍や神経線維腫など手術時に注意を要する場合や、悪性腫瘍の可能性もある腫瘍との鑑別が重要である。基本的にこれらの疾患を術前画像診断で鑑別するのは困難であり家族歴や臨床像について術前に評価しておくことが望ましいと考えられた。

## 文 献

- 1) Chung AD, Schieda N, Flood TA, et al.: Suburothelial and extrinsic lesions of the urinary bladder: radiologic and pathologic features with emphasis on MR imaging. *Abdom Imaging* **40**: 2573-2588, 2015
- 2) Henderson SJ, Kearns PJ, Tong CM, et al.: Patients with urinary bladder paragangliomas: a compiled case series from a literature review for clinical management. *Urology* **85**: e25-29, 2015
- 3) Ng KJ, Sherif A, McClinton S, et al.: Giant ancient schwannoma of the urinary bladder presenting as a pelvic mass. *Br J Urol* **72**: 513-514, 1993
- 4) Brown IR and Futter NG: Primary neurilemmoma of the bladder. *Br J Urol* **79**: 132-133, 1997
- 5) Cummings JM, Wehry MA, Parra RO, et al.: Schwannoma of the urinary bladder: a case report. *Int J Urol* **5**: 496-497, 1998
- 6) Geol H, Kim DW, Kim TH, et al.: Laparoscopic partial cystectomy for schwannoma of urinary bladder: case report. *J Endourol* **19**: 303-306, 2005
- 7) Wang W, Montgomery E and Epstein JI: Benign nerve sheath tumors on urinary bladder biopsy. *Am J Surg Pathol* **32**: 907-912, 2008
- 8) Gafson I, Rosenbaum T, Kubba F, et al.: Schwannoma of the bladder: a rare pelvic tumour. *J Obstet Gynaecol* **28**: 241-243, 2008
- 9) 福井真二, 喜馬啓介, 篠原雅岳, ほか: 膀胱壁に発生した Schwannoma の1例. *泌尿紀要* **56**: 513-516, 2010
- 10) Mosier AD, Leitman DA, Keylock J, et al.: Bladder schwannoma—a case presentation—. *J Radiol Case Rep* **6**: 26-31, 2012
- 11) Srinivasa Y, Bhat S and Paul F: Isolated primary schwannoma of urinary bladder. *J Clin Diagn Res* **10**: 12-13, 2016
- 12) Mazdar A, Asseban M, Aboussalah H, et al.: Schwannoma of the urinary bladder: a case report. *Pan Afr Med J* **18**: 84, 2014
- 13) 大竹慎二, 南村和宏, 藤川 敦, ほか: 膀胱原発 Schwannoma の1例. *泌尿器外科* **27**: 991-995, 2014
- 14) Mastoraki A, Toska F, Tsiverdis I, et al.: Retroperitoneal schwannomas: dilemmas in diagnostic approach and therapeutic management. *Gastrointest Canc* **44**: 371, 2013
- 15) Hung SF, Chung SD, Lai MK, et al.: Renal schwannoma: case report and literature review. *Urology* **72**: e3-6, 2008
- 16) Giovanni P, Antonio C, Jessica C, et al.: Scrotal extratesticular schwannoma: a case report and review of the literature. *BMC Urol* **14**: 32, 2014
- 17) 長沼俊秀, 安本亮二, 河野 学, ほか: 膀胱平滑筋腫の2例. *泌尿紀要* **44**: 833-837, 1998
- 18) 後藤大輔, 雄谷剛士, 富岡厚志, ほか: 膀胱原発悪性リンパ腫の1例. *泌尿紀要* **59**: 583-586, 2013
- 19) Das S, Bulusu NV and Lowe P: Primary vesical pheochromocytoma. *Urology* **21**: 20-25, 1983
- 20) Jade J, Wong-You-Cheong, Paula J, et al.: Neoplasms of the urinary bladder: radiologic-pathologic correlation.

- lation. *Radio Graphics* **26**: 553–580, 2006 505–513, 1999
- 21) Cheng L, Scheithauer BW, Leibovich BC, et al.:  
Neurofibroma of the urinary bladder. *Cancer* **86**:  
(Received on February 10, 2017)  
(Accepted on April 19, 2017)