

腫瘍核出術を施行した骨盤内神経鞘腫の1例

旭川医科大学泌尿器科学教室 (主任 : 八竹 直教授)

和田 直樹, 北原 克教, 沼田 篤, 徳光 正行
佐賀 祐司, 橋本 博, 金子 茂男, 八竹 直

旭川医科大学第2外科学教室

河 野 透

富良野協会病院泌尿器科

安住 誠, 小山内裕昭

TUMOR ENUCLEATION FOR PELVIC SCHWANNOMA : A CASE REPORT

Naoki WADA, Katsunori KITAHARA, Atsushi NUMATA, Masayuki TOKUMITSU,

Yuji SAGA, Hiroshi HASHIMOTO, Shigeo KANEKO and Sunao YACHIKU

From the Department of Urology, Asahikawa Medical College

Toru KOHNO

From the Second Department of Surgery, Asahikawa Medical College

Makoto AZUMI and Hiroaki OSANAI

From the Department of Urology, Furano Kyoukai Hospital

A 36-year-old man with a complaint of pollakisuria visited our hospital. A non-displaceable, palm-sized tumor was palpable in the lower abdomen. Laboratory data were normal except for slightly high serum S100 protein. Intravenous pyelography revealed hydronephrosis on the right side and deviation of the bladder to the left. Computed tomography revealed a heterogenous tumor in the pelvis with a cystic lesion and calcification. The tumor was 16×12×11 cm in size and in contact with the sacrum. The tumor was extirpated following diagnosis as a benign schwannoma by needle biopsy. The pelvic cavity was occupied by the tumor rigidly adhered to the sacrum. Although serious complications, such as bleeding and nerve injury were apprehended, we incised the tumor capsule and enucleated the contents as much as possible. The histopathological diagnosis of the resected specimen was benign schwannoma, type Antoni A.

In the last 10 years, 37 cases of pelvic schwannoma have been reported in the Japanese literature. In most of them, surgical extirpation was difficult to perform because of adhesion to the sacrum. If the tumor is confirmed benign from histopathologic findings preoperatively, tumor enucleation may become a therapeutic option.

(Acta Urol. Jpn. 50 : 821-824, 2004)

Key words : Pelvic schwannoma, S100 protein, Tumor enucleation

緒 言

神経鞘腫は末梢膠細胞の1つである Schwann 細胞から発生する腫瘍であり, そのため Schwannoma とも呼ばれる。本腫瘍は頭頸部に多く発生し骨盤内に発生することは少ない。今回われわれは仙骨と強固に癒着し, 腫瘍摘出に苦慮した骨盤内神経鞘腫症例を経験した。また, この腫瘍において病理診断で免疫染色として利用されている S100 蛋白 (以下 S100) の血中および腫瘍内容液中の濃度測定を今回の症例に対して試みた。この症例を報告するとともに骨盤内神経鞘腫

の本邦報告例および S100 について考察を加える。

症 例

患者 : 36歳 男性

主訴 : 頻尿, 下腹部腫瘍

現病歴 : 2002年春頃から下腹部の腫瘍に気付き, 11月上旬に頻尿を訴え近医泌尿器科を受診した。超音波検査で骨盤内に腫瘍を認めたため, 精査加療目的で2002年11月19日当科入院した。

既往歴, 家族歴 : 特記すべきことなし

入院時現症 : 身長 166.2 cm, 体重 65.8 kg. 頭頸

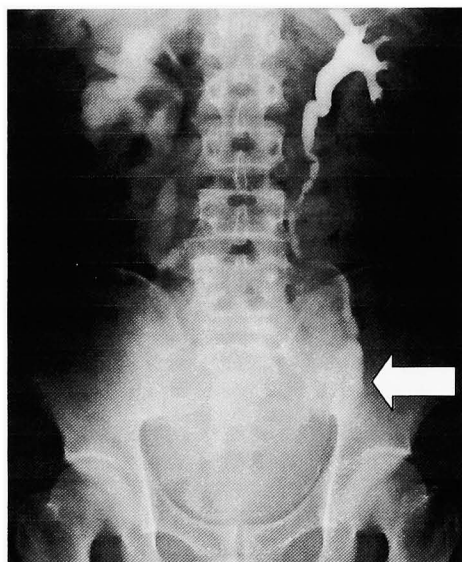


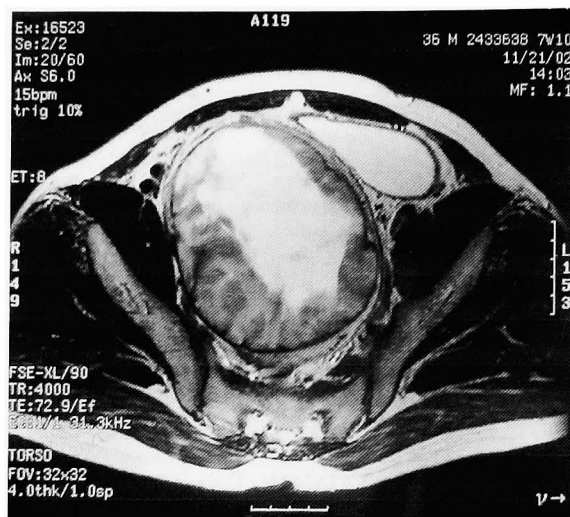
Fig. 1. IVP revealed a hydronephrosis on the right side and deviation of bladder to left side (white arrow).

部、胸部、四肢に異常を認めなかった。下腹部に可動性のない手掌大の硬い腫瘤を触知した。

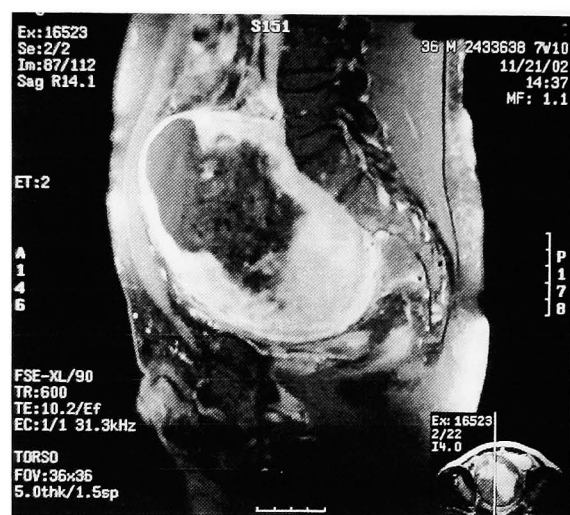
入院時検査所見：血液検査では貧血を認めず、血液生化学にも異常を認めなかった。各種腫瘍マーカー（基準値）：T-PSA 0.3 ng/ml（4以下）、CEA 1.0 ng/ml（4.9以下）、CA19-9 <3 U/ml（39以下）、AFP 6 ng/ml（19以下）、NSE 6.4 ng/ml（12以下）と異常を認めなかったが、血中 S100 は 0.15 ng/ml（参考上限値 0.12 ng/ml：LIA-mat Sangtec 100）と若干の高値を示していた。

画像検査所見：超音波断層法では下腹部に嚢胞状構造を有する低輝度の腫瘤を認めた。IVP では右水腎症と膀胱の左側への圧排を認めた（Fig. 1）。腹部 CT では骨盤内の仙骨前面に一部石灰化をともなった内部不均一の 16×12×11 cm の腫瘤をみとめ、膀胱は左腹側に圧排されていた。この腫瘍は MRI では実質部分は T1 強調画像で低信号として、T2 強調画像では不均一な高信号として描出され、また仙骨前面と広く接していた（Fig. 2）。腹部血管造影では上、下腸間膜動脈造影では異常を認めず、内腸骨動脈、特に正中仙骨動脈から腫瘍への栄養血管が認められた。

以上より骨盤内後腹膜に発生した軟部腫瘍と診断し、鑑別診断のために局所麻酔下に腫瘍針生検を行った。生検組織の病理組織学的診断は S100 免疫染色陽性の良性神経鞘腫であった。後日あらためて開腹下に腫瘍摘出術を行った。下腹部正中切開を行い、経腹膜的に腫瘍に達した。右尿管は腫瘍前面に癒着していたが容易に剥離可能であった。腫瘍は骨盤内を占拠しており術中操作が困難であったため、腫瘍被膜を切開し内容を核出した。さらに腫瘍後面は仙骨と強固に癒着



a



b

Fig. 2. MRI. A heterogeneous high intensity tumor in T2 weighted image (a). The tumor adheres to the sacrum (b, contrast T1 weighted image).

しており剥離困難であった。神経障害を懸念し、腫瘍被膜の仙骨癒着部分の一部を残し、腫瘍を摘出した。術中の出血量は約 5,200 ml であった。また術中に黄色漿液性の腫瘍内容液を約 300 ml 回収した。内溶液中の S100 濃度は 412 ng/ml であり、血中 S100 の参考上限値（0.12 ng/ml）と比較すると非常に高値を示していた。

摘出腫瘍の重量は 729 g であり、乳白色の腫瘍であった。病理組織学的には、一部硝子化や変性を伴い、紡錘形細胞が柵状配列を成す腫瘍であり、S100 免疫染色陽性であった（Fig. 3）。悪性所見はみられなかった。以上より Antoni A 型の良性神経鞘腫と診断した。

術後経過は良好で、神経学的合併症もなく、術後第 30 病日に退院した。現在外来にて経過観察中である。

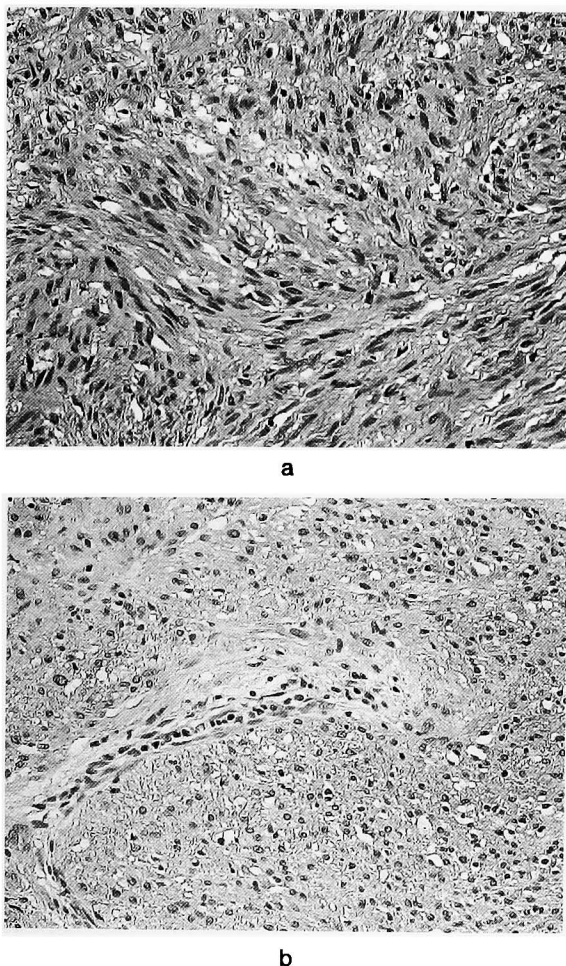


Fig. 3. Spindle cells makes a palisading pattern (a, HE×200). Tumor cells show positive staining for S100 protein (b, ×200).

が、術後2カ月目の血中 S100 は 0.05 ng/ml 未満であり、術前と比較し低下していた。また術後1年6カ月経過した現在、残存腫瘍の増大傾向はなく、再発の徴候は認められない。

考 察

神経鞘腫は神経膠細胞の1つである神経鞘細胞 (Schwann 細胞) から発生し、Schwannoma と呼ばれる。本腫瘍は一般に頭頸部に好発し、後腹膜さらには骨盤内後腹膜に発生することは比較的稀である¹⁾。過去10年間に本邦で報告された骨盤内後腹膜に発生した神経鞘腫は調べた限りで37例存在した。発症年齢は21歳から81歳 (平均56歳) と幅広く、男性に多い傾向であった (男性25例、女性12例)。本腫瘍に特有の症状はなく、排尿障害や腹部腫瘍、偶発腫瘍が発見の契機として多く、その他に分娩困難²⁾、不正性器出血³⁾などの産婦人科症状や腎部あるいは下肢の痛み、しびれ⁴⁾などの神経症状を訴えることもある。そのために泌尿器科、外科をはじめ産婦人科や整形外科

においても扱われている。

画像検査では CT, MRI を施行されることが多い。多くの症例では CT で境界明瞭であり、嚢胞状変化を有する low density な腫瘍として描出される。また石灰化を伴うこともある。MRI では T1 強調画像は low または iso intensity, T2 強調画像では high intensity に描出されることが多い。血液検査では特徴的な所見はなく、現在のところ特異的な腫瘍マーカーも確認されていない。本腫瘍の病理診断で用いられる S100 の血中および腫瘍内容液中の濃度が高値を示すのではないかと推測し、測定を試みたところ血中 S100 は若干の高値を示しており、腫瘍摘出後に低下していた。本腫瘍で血中 S100 が高値を示すことは Fagnart⁵⁾ によっても報告されているが、本邦で血中 S100 を測定した報告は認められなかった。血中 S100 の参考上限値は、Sangtec 社によって健常者100名から算出された値を用いた。過去に腫瘍内容液中の S100 を測定した報告も調べた限りでは認められなかったが、今回の症例では腫瘍内容液中の S100 も血中濃度と比較し高値を示していた。本来 S100 は細胞周期や分化 増殖を調節する分子量 10~12 kDa のカルシウム結合蛋白であり⁶⁾、病理診断における免疫組織染色の際にその抗体が用いられている。またさらに最近では血中や髄液中の濃度を測定することで、神経疾患などの病勢を客観的にとらえることも試みられるようになった⁵⁻⁷⁾。本腫瘍の最終的な診断は S100 免疫染色を利用した病理組織学的診断に頼らざるを得ないが、血中や腫瘍内容液中の S100 の測定は画像所見とあわせて術前診断の一助になるのではないかと考えられる。

本腫瘍の治療として、悪性症例に対する放射線療法や化学療法が有効であるとの報告もあるが^{8,9)}、一般にその感受性は乏しく、外科的摘出が唯一の治療法であるといえる。今回は術前生検で良性と判断した後に外科的摘出に臨んだが、仙骨との強固な癒着と術後の神経障害を懸念し、完全摘出にいたらなかった。過去10年間で手術の詳細が記載されていた26例中、21例 (81%) においてやはり多くが仙骨との癒着のため腫瘍摘出に苦慮している。本腫瘍の発生母地がおそらく仙髄神経を源としていることから仙骨や腸骨との強固な癒着を来し、そのために外科的摘出を困難なものとしている類推される。上記症例の中で術後何らかの神経障害が出現した症例は8例 (Table 1) 存在し、そのうち5例では完全摘出のために神経根の切断や椎骨の合併切除を行っている。神経損傷を懸念し、術前生検で良性腫瘍と診断されていれば、腫瘍核出も治療選択肢の1つになるのではないかと考えるが、再発や悪性化の報告例もわずかではあるが散見される^{1,10)}。本症例も術後1年6カ月を経た現在、再発の徴候は認

Table 1. Neuropathy cases after extirpating tumor

症例	年齢	性別	腫瘍 最大径	術中所見	神経障害	報告者	報告年
1	60	男	13 cm	仙骨と癒着, S2 から発生しており仙骨神経切断	大腿内側の知覚障害	目黒ら	1994
2	50	男	16 cm	仙骨と癒着, 仙骨前面は鈍的に剝離	仙骨神経領域の神経障害	後藤ら	1995
3	28	女	11 cm	腸骨の一部を腫瘍と一塊にして摘出	腸腰筋筋力低下	北野ら	1996
4	28	男	不明	腫瘍核出	射精障害	前田ら	1997
5	48	男	15 cm	被膜切開, 腫瘍核出, 残存被膜を S2 神経根とともに摘出	腓骨神経麻痺	末富ら	1999
6	61	男	15 cm	S2 神経根茎部切断, 第五腰椎椎弓切除	膀胱直腸障害	賀代ら	2000
7	34	男	15 cm	仙骨と癒着, 鈍的に剝離	射精障害	金住ら	2001
8	45	女	12 cm	腸腰筋, 陰部大腿皮神経に癒着, 腰椎神経根切断	排尿障害, 下肢知覚障害	笠原ら	2002

められないが, 長期にわたる厳重な経過観察が重要であると考ええる.

結 語

仙骨との癒着が強固であり, 外科的に腫瘍全摘出が困難であった大きな骨盤内神経鞘腫の1例を経験した. 本疾患の本邦報告例および S100 について考察を加えた.

参 考 文 献

- 1) Das Gupta TK, Brasfield RD, Strong EW, et al.: Benign solitary schwannoma (neurinomas). *Cancer* **24**: 355-366, 1969
- 2) 千里直之, 高橋昌宏, 許 理威, ほか: 骨盤内後腹膜神経鞘腫の1例. *旭川厚生病医誌* **8**: 143-146, 1998
- 3) 田中寿明, 磯部 真, 那須賢司, ほか: 骨盤内後腹膜に発生した神経鞘腫の1例. *日臨外会誌* **59**: 240-243, 1998
- 4) 高山仁志, 伊藤喜一郎, 東田 章, ほか: 腫瘍核出術を施行した骨盤内神経鞘腫の2例. *泌尿紀要* **42**: 691-693, 1996
- 5) Fagnart OC, Slindic CJM and Laterre C: Particle counting immunoassay of S100 protein in serum: possible relevance in tumor and ischemic disorders of the central nervous system. *Clin Chem* **34**: 1387-1391, 1988
- 6) Heizmann CW, Fritz G and Schafer BW: S100 proteins: structure, function and pathology. *Front Biosci* **7**: 1356-1368, 2002
- 7) 空野謙次, 廣瀬善清, 祖父江元, ほか: 神経疾患マーカーとしての髄液中 NSE と S100 蛋白質. *最新医学* **52**: 141-147, 1997
- 8) Goldman RL, Jones SE and Heusinkveld RS: Combination chemotherapy of metastatic malignant schwannoma with vincristine, adriamycin, cyclophosphamide, and imidazole carboxamide. *Cancer* **39**: 1955-1958, 1977
- 9) 奥村 哲, 吉田和弘, 西村泰司, ほか: 後腹膜悪性神経鞘腫の1例. *泌尿紀要* **30**: 235-247, 1984
- 10) 斎藤竜一, 石塚榮一, 岩崎 皓, ほか: 骨盤内後腹膜悪性神経鞘腫の1例. *泌尿紀要* **43**: 25-28, 1997

(Received on July 28, 2003)
(Accepted on July 8, 2004)