

腹腔鏡手術で摘出した後腹膜 Ganglioneuroma の 1 例

吉田 崇¹, 井上 貴昭¹, 西田 晃久¹, 川喜多繁誠¹六車 光英¹, 室田 卓之¹, 木下 秀文², 松田 公志²¹関西医科大学附属滝井病院泌尿器外科, ²関西医科大学附属枚方病院泌尿器外科LAPAROSCOPIC EXCISION OF A RETROPERITONEAL
GANGLIONEUROMA: A CASE REPORTTakashi YOSHIDA¹, Takaaki INOUE¹, Teruhisa NISHIDA¹, Shigenari KAWAKITA¹,
Kouei MUGURUMA¹, Takashi MUROTA¹, Hidefumi KINOSHITA² and Tadashi MATSUDA²¹The Department of Urology and Andrology, Kansai Medical University, Takii Hospital²The Department of Urology and Andrology, Kansai Medical University, Hirakata Hospital

A 32-year-old female with a history of hypertension and paroxysmal supraventricular tachycardia (PSVT) presented with a 63 × 39 mm, well-circumscribed retroperitoneal mass found by ultrasonography and abdominal computed tomography (CT). CT revealed a round, homogeneous tumor with calcification at the left renal hilum, and compressing the left adrenal and renal veins. Endocrinological examinations were within the normal range. Transabdominal laparoscopic excision of the retroperitoneal mass was planned because tumor malignancy could not be excluded by preoperative analyses. Histopathological examination proved that the tumor was a ganglioneuroma arising from the extra-adrenal retroperitoneum.

(Hinyokika Kyo 60 : 279-282, 2014)

Key words : Retroperitoneal ganglioneuroma, Laparoscopic excision

緒 言

Ganglioneuroma は後腹膜腫瘍の中でも特に稀な交感神経節由来の良性腫瘍である¹⁾。治療として以前は開腹手術が主流であったが²⁾、近年では侵襲の少ない腹腔鏡下手術による腫瘍摘出術の症例報告が増えてきている。今回、われわれは後腹膜 ganglioneuroma に対する腹腔鏡下摘出術を施行した 1 例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 32歳, 女性

主 訴 : なし

既往歴 : 特記事項なし

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 19歳頃より健康診断で高血圧を指摘されるも無治療で経過した。28歳で第一子出産後、持続する高血圧を認め近医を受診し、スピロノラクトン、メチルドパを処方された。血圧は 120/60 mmHg 台で安定するも、2013年 1 月、動悸を認め発作性上室性頻拍の診断を受けた。造影 CT で左副腎に 63 × 39 mm の腫瘍を認め、褐色細胞腫の疑いで当科紹介受診となった。

入院時現症 : 身長 : 162 cm, 体重 : 52 kg, 身体所見 : 特記事項なし。

入院時検査所見 : 一般血液、尿検査は特に異常所見なく、血液生化学検査では CRP 0.483 と軽度上昇のみであった。また内分泌検査では血中、尿中コルチゾール、ACTH、カテコラミン値、レニン値に異常は認めなかった。

画像所見 : 腹部エコーで左副腎に血流を伴わない表面平滑、境界明瞭で内部均一の一部石灰化を有する腫瘍を認めた。腹部造影 CT では、左副腎より発生する境界明瞭の 63 × 39 mm 大の造影効果に乏しい腫瘍を認め、一部に点状の石灰化を認めた (Fig. 1)。また、



Fig. 1. Contrasted-enhanced CT scan of abdomen shows a low-density mass with calcification at the left renal hilum.

左腎静脈、左副腎静脈、左腎動脈は腫瘍により圧排されていた。その他、PET-CT や MIBG シンチグラフィで明らかな集積は見られなかった。また、腹部MRI は患者が閉所恐怖症のため施行できなかった。

以上から、ホルモン非分泌活性型副腎腫瘍と診断した。

鑑別診断として、皮質腺腫、嚢腫、内分泌非活性副腎皮質癌などを含む副腎腫瘍、また後腹膜腫瘍として悪性リンパ腫、脂肪肉腫、平滑筋肉腫、奇形腫、脂肪腫、神経鞘腫などが考えられた。臨床症状、採血結果より悪性リンパ腫の可能性は低く、また画像上脂肪成分を含んでいないことから脂肪肉腫や奇形腫の可能性も低いと考えた。今回、われわれは腫瘍が非内分泌活性で造影効果に乏しく、内部均一な low density であることを考慮し臨床診断として副腎原発神経鞘腫を疑った。しかし、腫瘍径が 60 mm 以上の場合悪性の可能性が否定できないため、左副腎摘出を含めた手術加療が必要と判断した。画像上、腫瘍と隣接臓器の間は境界明瞭で浸潤の可能性は低く、周囲組織との剥離は可能と考え、腹腔鏡下手術を施行する方針とした。しかし、術中の周囲組織との癒着や浸潤の程度によっては開腹手術に移行する可能性がある事について十分なインフォームドコンセントを得た。

手術所見：全身麻酔下、左側臥位でポートの位置は通常の経腹的副腎腫瘍摘出術の様式を用いた。脾臓、降尾部、下行結腸を内側に脱転し、腫瘍と腎動静脈・左腎上極・降尾部との間の視野を十分に展開した状態で、腫瘍と腎上極の間の剥離を行った。途中、術前CT でも確認していた通り、腎静脈より分枝する副腎静脈は腫瘍に圧排されていたため、繊細な剥離操作を必要とした (Fig. 2)。また、腫瘍周囲には強固な比較的大径の太いリンパ管や神経管を認め、sealing device で切離し副腎と共に腫瘍を摘出した (Fig. 3)。ドレーンを1本留置し、手術時間は240分、出血量は少量で、術中合併症や腫瘍摘出による vital sign の変動は認め

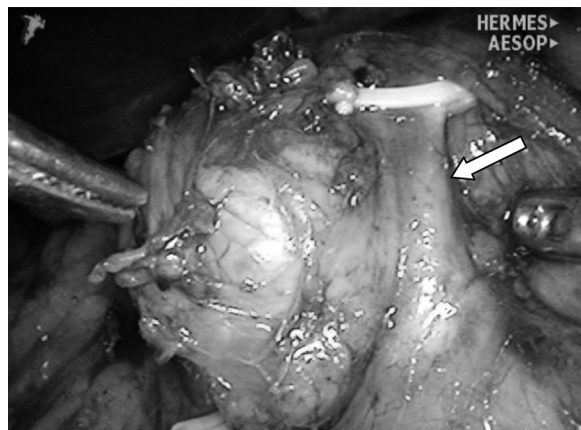


Fig. 2. The tumor was adjacent to the left adrenal vein (arrow).

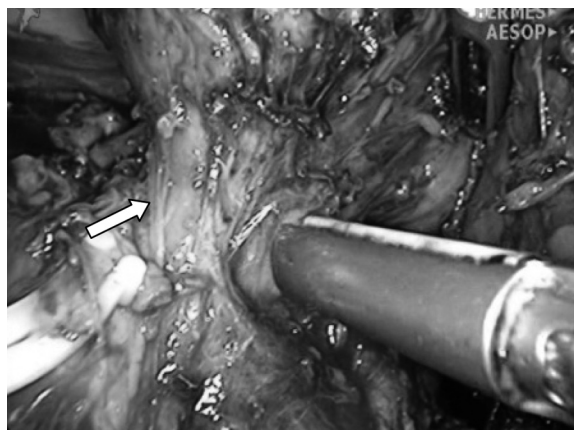


Fig. 3. The tumor was firmly adhered to the bundle of lymphatic vessels and neural tubes (arrow).

なかった。術後第3病日で軽度リンパ漏を認めたものの、第5病日にドレーンを抜去し、第7病日に退院した。また、因果関係は不明だが、術後の血圧は正常化した。

摘出標本肉眼的所見：腫瘍径は 42×23 mm、弾性



Fig. 4. Macroscopic view of the specimen.

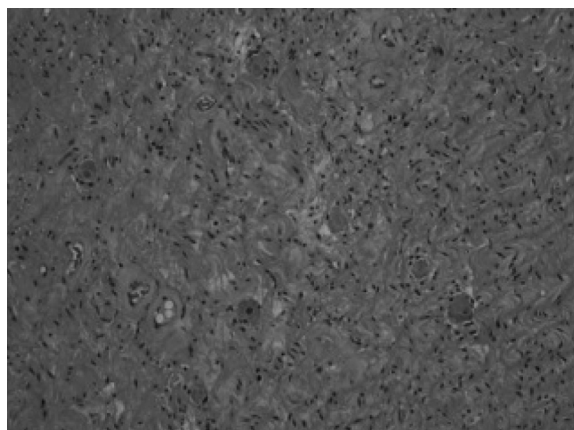


Fig. 5. The tumor consisted of ganglion cells and spindle-shaped cells with abundant collagenous stroma (HE stain ×100).

軟で断面は灰白色の比較的均一な充実性腫瘍であった。また、正常副腎は圧排のみで腫瘍との連続性や浸潤は認められなかった (Fig. 4)。

病理組織学的所見: HE 染色で散在性に神経節細胞を認め、紡錘形細胞と増殖した神経線維束を有していた (Fig. 5)。また、明らかな悪性所見は認めなかった。免疫染色では、神経外胚葉由来細胞の細胞質や核に含まれる S-100、また神経系細胞接着分子である CD-56 が共に陽性、その他は陰性であった。

以上より後腹膜 ganglioneuroma と診断した。

考 察

Ganglioneuroma は神経堤由来の交感神経系腫瘍に属し、原発性後腹膜腫瘍の中で0.72~1.6%と比較的稀な腫瘍である³⁾。通常、非内分泌活性で腫瘍径が増大し隣接臓器の圧排に伴う症状を発症するまでは、無症候性に経過する事が多いとされている³⁾。稀にカテコラミン産生、MIBG uptake を認める事があり下痢、多汗、高血圧の症状を契機に発見される場合もある⁴⁾。また vasoactive intestinal peptide (VIP) 産生例やテストステロン産生例も報告されている⁵⁾。男女比は1.13:1と特に差はなく⁴⁾、好発部位は縦隔 (39%)、後腹膜 (30%)、副腎 (22%)、頸部 (8%) である⁶⁾。また副腎由来が49%、副腎外由来が51%である⁷⁾。画像所見としては、腹部超音波検査では内部均一な低エコーであり、ドップラーエコーで hypovascularity を示す。CT 所見としては low density で、homogeneous mass として認められる事が多く、造影 CT では超音波検査と同様、造影効果に乏しい。また約20%の症例で点状の石灰化を認めるとの報告がある⁸⁾。自験例では施行できなかったが、MRI も鑑別診断に有用との報告がある。MRI では T1WI で均一な低信号、T2WI で腫瘍内の粘液量基質の含有と相関し、粘液基質が多いと高信号、神経節細胞や繊維成分が多いと低信号を呈する。また、造影早期相で造影効果は乏しく、遅延相にかけ徐々に造影効果の増強を認める特徴を有する^{4,9)}。

Ganglioneuroma の治療としては、基本的には手術による完全切除が推奨されている。その理由として Yang らは、術後に adrenal ganglioneuroma と診断された症例の64.7%が、術前で画像上異なる診断を下していたと報告しており¹⁰⁾、画像所見だけでは質的診断や malignancy を否定できないからである。また、ganglioneuroblastoma, neuroblastoma など悪性腫瘍への移行例や混在例が存在する事が報告されており、積極的に外科的治療を検討すべきと考えられる。

近年、後腹膜 ganglioneuroma に対する腹腔鏡手術の症例報告を散見する。そこで、われわれは retroperitoneal ganglioneuroma, laparoscopic を key word に文

Table 1. Characteristics of retroperitoneal ganglioneuroma treated by laparoscopic excision

No articles	37	
No cases	67	
Age (yr)		
Mean (range)	36.6 (7-72)	
Size (cm)		
Mean (range)	6.3 (1-15)	
	Cases (n = 67)	(%)
Sex		
Male	30	44.8
Female	37	55.2
Localization		
Extra adrenal	29	43.2
Adrenal	39	58.2

Table 2. Summary of operation time, blood loss, hospitalization

	Cases (n = 26)	
Operation time (min)		
Mean	190.4	
Range	100-350	
Blood loss (ml)		
Mean	68.3	
Range	75-330	
Hospitalization (day)		
Mean	4.9	
Range	2-12	

献検索を行った。その結果、本邦で22例、海外では45例が報告されており、計67例について Table 1 にまとめた^{6,9-23)}。さらにその中で手術時間、出血量、入院期間に関する記載があった26症例について Table 2 にまとめた。

平均年齢は36.6歳、性別は女性が男性に比べ若干多い程度であった。腫瘍サイズは最大 15 cm で、平均は 6.3 cm、腫瘍の局在に関しては副腎外発生が42.3%であった。また、手術時間は平均190分、平均出血量は 68.3 ml、入院期間は 5 日前後であった。これらのデータと自験例を比較すると、手術時間は平均より長いものの、出血量は少量であり比較的安全に手術を施行できたと考えられる。

また、後腹膜 ganglioneuroma に対する腹腔鏡手術の適応に関して明確な基準はないが、腫瘍径は 7 cm 以内が妥当との報告がある¹⁰⁾。ただし、腫瘍と周囲血管系との癒着・浸潤のため開腹手術へ移行した例も報告されており²⁴⁾、腹腔鏡手術を選択する上で、術中所見により開腹手術へ移行する可能性について、患者に十分なインフォームドコンセントを得る事が非常に重要である。

結 語

われわれはこの度、後腹膜 ganglioneuroma の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Enzinger FM and Weiss SW: Soft tissue tumors. Second edition, CV Mosby Co, St Louis: 816-835, 1988
- 2) Papavramidis TS, Michalopoulos N, Papavramidis ST, et al.: Retroperitoneal ganglioneuroma in an adult patient: a case report and literature review of the last decade. *South Med J* **102**: 1065-1067, 2009
- 3) Singh J, Priyadarshi VK, Pandey PK, et al.: Retroperitoneal ganglioneuroma. *APSP J Case Rep* **4**: 8, 2013
- 4) Georger B, Hero B, Berthold F, et al.: Metabolic activity and clinical features of primary M ganglioneuromas. *Cancer* **91**: 1905-1913, 2001
- 5) Adachi S, Kawamura N, Hatano K, et al.: Lipomatous ganglioneuroma of the retroperitoneum. *Pathol Int* **58**: 183-186, 2008
- 6) 八木澤隆史, 近藤恒徳, 田邊一成, ほか: 腹腔鏡下手術にて摘除し得た後腹膜神経節細胞腫の1例. *J Endourol* **26**: 138-141, 2013
- 7) 池上修生, 小田島邦夫, 浅野友彦, ほか: 後腹膜神経節細胞の1例. *西日泌尿* **58**: 879-882, 1996
- 8) Ichikawa T, Ohtomo K, Araki T, et al.: Ganglioneuroma: computed tomography and magnetic resonance features. *Br J Radiol* **69**: 114-121, 1996
- 9) Zografos GN, Kothionidis K, Ageli C, et al.: Laparoscopic resection of large adrenal ganglioneuroma. *JSLs* **11**: 487-492, 2007
- 10) Qing Y, Bin X, Jian W, et al.: Adrenal ganglioneuromas: a 10-year experience in a Chinese population. *Surgery* **147**: 854-860, 2010
- 11) Shi BB, Li HZ, Chen C, et al.: Differential diagnosis and laparoscopic treatment of adrenal pheochromocytoma and ganglioneuroma. *Chin Med J (Engl)* **122**: 1790-1793, 2009
- 12) Sucandy I, Akmal YM and Sheldon DG: Ganglioneuroma of the adrenal gland and retroperitoneum: a case report. *N Am J Med Sci* **3**: 336-338, 2011
- 13) Alimoglu O, Caliskan M, Acar A, et al.: Laparoscopic excision of a retroperitoneal ganglioneuroma. *JSLs* **6**: 668-670, 2012
- 14) Oue T, Yoneda A, Sasaki T, et al.: Total laparoscopic excision of retroperitoneal ganglioneuroma using the hanging method and a vessel-sealing device. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* **18**: 779-782, 2008
- 15) Shah SR, Purcell GP, Malek MM, et al.: Laparoscopic right adrenalectomy for a large ganglioneuroma in a 12-year-old. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* **20**: 95-96, 2010
- 16) Camelo M, Aponte LF and Lugo-Vicente H: Dopamine-secreting adrenal ganglioneuroma in a child: beware of intraoperative rebound hypertension. *J Pediatr Surg* **47**: 29-32, 2012
- 17) Ahn KS, Han HS, Yoon YS, et al.: Laparoscopic resection of nonadrenal retroperitoneal tumors. *Arch Surg* **146**: 162-167, 2011
- 18) Sasaki A, Suto T, Nitta H, et al.: Laparoscopic excision of retroperitoneal tumors: report of three cases. *Surg Today* **40**: 176-180, 2010
- 19) Linos D, Tsirlis T, Kapralou A, et al.: Adrenal ganglioneuromas: incidentalomas with misleading clinical and imaging features. *Surgery* **149**: 99-105, 2011
- 20) Yamaguchi K, Hara I, Takeda M, et al.: Two cases of ganglioneuroma. *Urology* **67**: 622, 2006
- 21) Eassa W, El-Sherbiny M, Jednak R, et al.: The anterior approach to retroperitoneoscopic adrenalectomy in children technique. *J Pediatr Urol* **8**: 35-39, 2012
- 22) Ito H, Kurokawa T, Yokoyama O, et al.: Composite paraganglioma with ganglioneuroma in the retroperitoneal space. *Int J Urol* **17**: 385-386, 2010
- 23) Laje P and Mattei PA: Laparoscopic adrenalectomy for adrenal tumors in children: a case series. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* **19**: 27-29, 2009
- 24) 筒井信浩, 柴 浩明, 北村博顕, ほか: 後腹膜神経節細胞腫の1切除例. *日外科系連会誌* **38**: 377-381, 2013

(Received on January 6, 2014)

(Accepted on February 25, 2014)