

膀胱に原発した神経節細胞腫 (ganglioneuroma) の1症例

京都市立病院泌尿器科 (部長：上山秀磨博士)

伊 藤 坦
岡 村 康 彦*
伊 東 三 喜 雄**
上 山 秀 磨

GANGLIONEUROMA OF THE BLADDER : REPORT OF A CASE AND REVIEW OF THE LITERATURE

Hitoshi ITOH, Yasuhiko OKAMURA,
Mikio ITOH and Hidemaro UHEYAMA

*From the Department of Urology, Kyoto City Hospital
(Director: H. Ueyama, M.D.)*

Herein is reported a case of ganglioneuroma that originated in the bladder wall of a 62-year-old man who complained of gross hematuria and dysuria. Laboratory examinations revealed no elevation of VMA in the urine but mild elevation of the serum CEA. A well-encapsulated solid tumor, 5×5×3 cm in size, was found in the right lateral wall of the bladder during the operation. The tumor was very hard and the cut surface was gray to yellow-brown. The well-differentiated ganglion cells and neuron sheath cells without mitosis were histologically evident.

Postoperative course was uneventful. The serum CEA level dropped to the normal range soon after the operation. The literature on ganglioneuroma is reviewed.

Key words : Ganglioneuroma, Bladder tumor, CEA

はじめに

ganglioneuroma は、交感神経神経節細胞および少数の神経線維より構成される良性腫瘍であるが、発生的に ganglioneuroblastoma および neuroblastoma

と同じ範疇に入る疾患 (Fig. 1) であり、稀な疾患である。

このたび著者は、膀胱に原発したと考えられる ganglioneuroma の1例を経験したので報告するとともに若干の文献的考察を行なった。

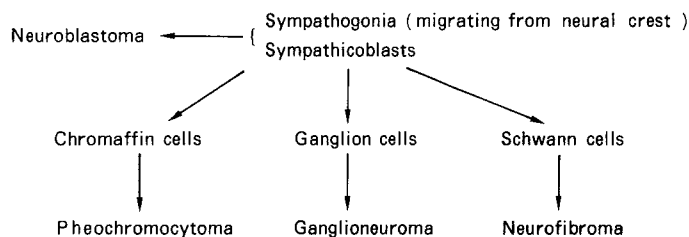


Fig. 1. Tumors originating from neural crest cells¹⁾.

* 現：武田病院泌尿器科

** 現：伊東医院

症 例

患者：H. S. 62歳，男子。

初診：1980年4月24日。

主訴：肉眼的血尿，排尿困難。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：数年来糖尿病にて加療中。

現病歴：1980年2月中旬より，ときに肉眼的血尿，凝血塊の排尿困難を生じ，某医院を受診し，膀胱炎として加療を受けていた。血尿，排尿困難は消失するときもあったが，たびたび繰り返すため，4月24日当科を受診した。初診時，顕微鏡的血尿を認め排泄性腎盂造影にて膀胱右側壁部に陰影欠損を認めた。同時に膀胱鏡検査を行ない，右尿管口外側，後上方部に大きな円形の隆起性腫瘍を認め，5月29日入院した。

入院時現症：体格，栄養状態良好。眼瞼結膜に貧血，黄疸を認めず，肝臓は1横指触知するも辺縁平滑で圧痛なし。脾臓は触知せず。直腸内指診にて左右対称，表面平滑，弾性硬の正常大の前立腺を認む。胸部の打聴診にても異常は認めず。

入院時検査所見：血圧；102/80 mmHg，赤沈；8.5 mm/h，末梢血；RBC $419 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Hb 12.7 g/dl，Ht 35.6%，WBC 8,000/mm³。分画；St. 11%，Seg. 49%，E. 3%，B. 0%，Ly. 34%，Mo. 3%。検尿；pH 7.0，蛋白（+），糖（+）。沈渣；RBC 50~70/HPF，WBC 50~70/HPF。血液化学；BUN 9 mg/dl，creatinine 0.9 mg/dl，Na 141 mEq/l，K 3.4 mEq/l，Cl 105 mEq/l，Ca 4.4 mEq/l，P 2.9 mg/dl，T.P. 6.5 g/dl，A/G 1.2，Uric acid 5.3 mg/dl，GOT 24 U，GPT 29 U，ALP 84 U，LDH 175 U，HDL-C 36 mg/dl，ACP 2.4 KAU，

PSAP 0.5 KAU，血糖 167 mg/dl，CEA 7.95 ng/ml，尿中 VMA（-），Ccr 61 l/day。胸部X線，ECGにて異常なし。

膀胱鏡検査（Fig. 2）：右尿管口，内尿道口とは完全に境され，表面は肉眼的にはほとんど正常な粘膜におおわれた隆起性病変を認む。中央部にブドウの房状の変化を認め，この部の生検を行なったが，ほぼ正常の移行上皮を示していた。

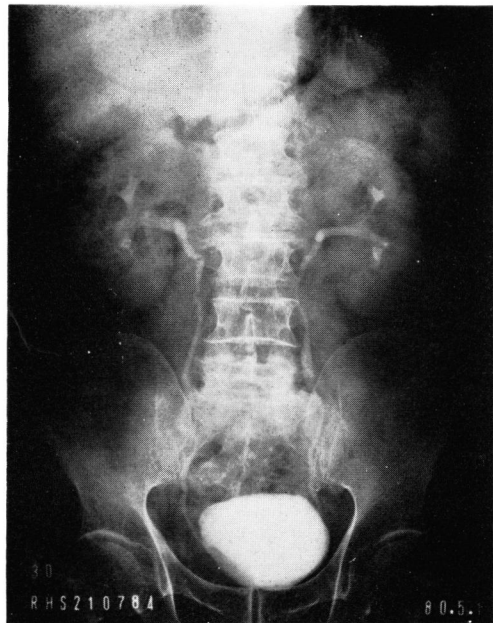


Fig. 3. Excretory urogram shows normal upper urinary tract and small shadow defect in the right margin of the cystogram.

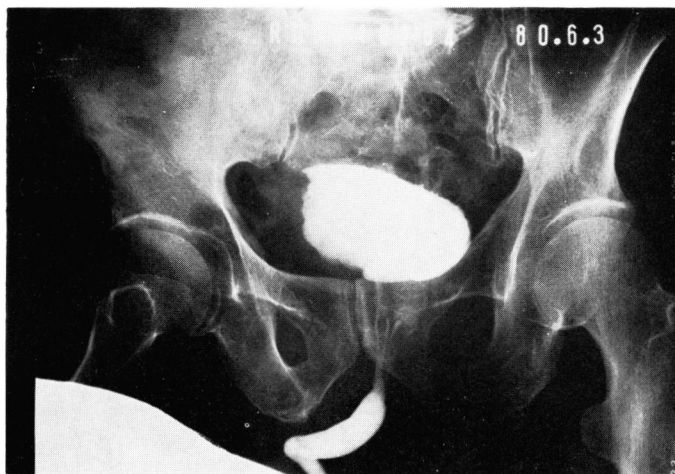


Fig. 4. Retrograde urethrocystogram shows large defect in the same part as seen on excretory urogram.

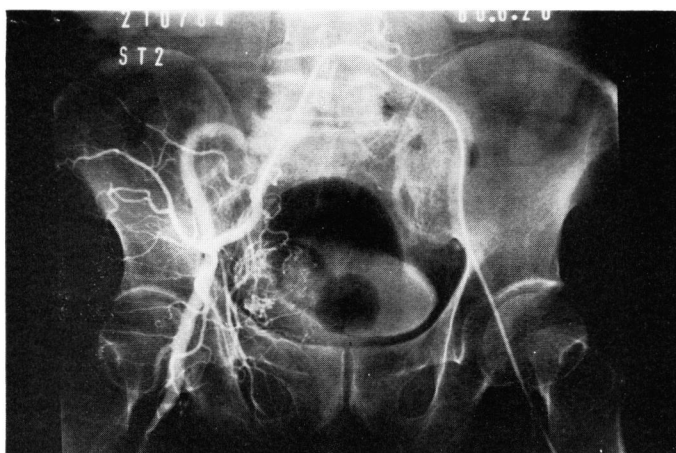


Fig. 5. The right internal iliac arteriogram shows well encapsulated and solid mass with hypervascular contents. Puddling and pooling are well demonstrated.

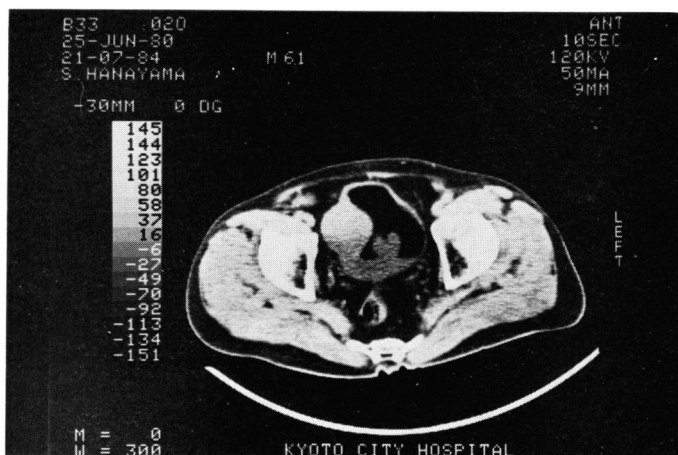


Fig. 6. Pelvic CT scan shows large mass in the right lateral wall, which is well encapsulated from the surrounding tissues.

X線検査：排泄性腎盂造影 (Fig. 3)；上部尿路には著変なく，腎盂腎杯も正常である。膀胱像において，膀胱右側壁に軽度の陰影欠損を認む。逆行性尿道膀胱造影 (Fig. 4)；尿道の延長もなく，前立腺の膀胱内突出も認めない。膀胱右側壁部に著明な陰影欠損を認む。右内腸骨動脈造影 (Fig. 5)；隆起性腫瘍部の血管は，hypervascularityを示し，pooling, puddlingも認められるが，well encapsulatedな像を示している。骨盤部 CT (Fig. 6)；膀胱右側壁に粘膜下の腫瘍が認められる。この腫瘍は膀胱壁内に限局し，また近接リンパ節に著変を認めなかった。

膀胱鏡検査および生検より膀胱粘膜は正常で，内腸骨動脈造影，骨盤部 CT より腫瘍は被膜内に限局したものであり，さらに上部尿路には異常を認めないことなどより，膀胱粘膜下に発生した限局性腫瘍として

7月3日全身麻酔下に膀胱部分切除術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開にて骨盤腔内に達した。膀胱外壁と腹膜との間に癒着はなく，剝離は容易であった。腫瘍は限局性で膀胱外側部に浸潤を認めず，周囲を含め切除し摘出した。

摘除標本所見：肉眼的所見 (Fig. 7)；腫瘍は $5 \times 5 \times 3$ cm であった。色調は灰白色から黄褐色を呈していた。組織学的所見 (Fig. 8A, B)；良く分化した ganglion cell 集団の増生を認め，一定の atypia はあるものの ganglion cell や，neuron-sheath cell への分化傾向を良く保持していて，mitosis の所見もほとんどない。

以上の所見より膀胱に原発した ganglioneuroma と診断した。

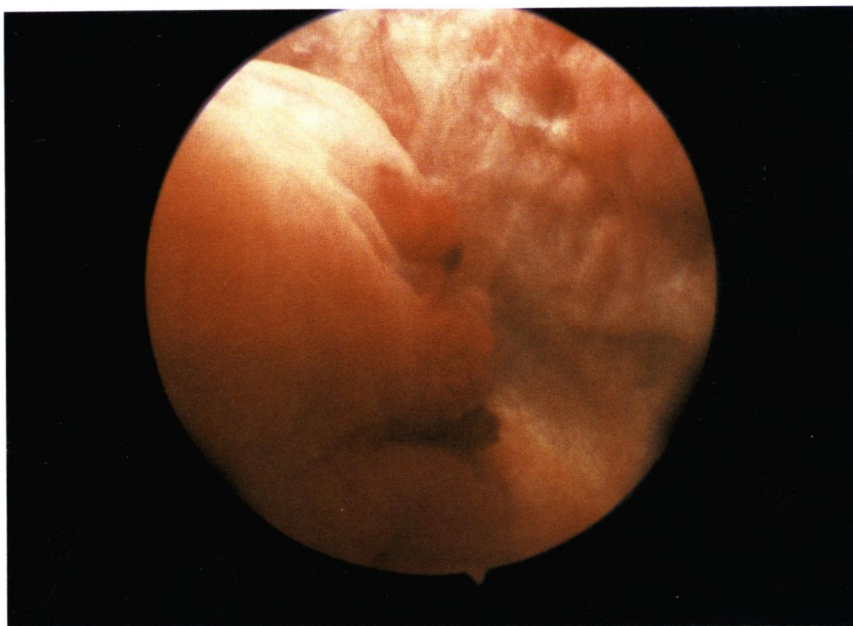
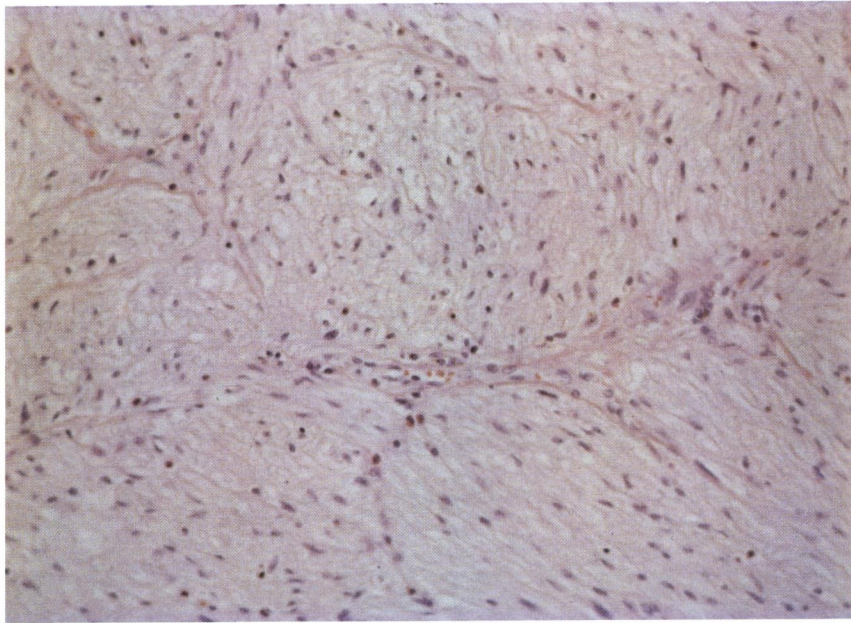


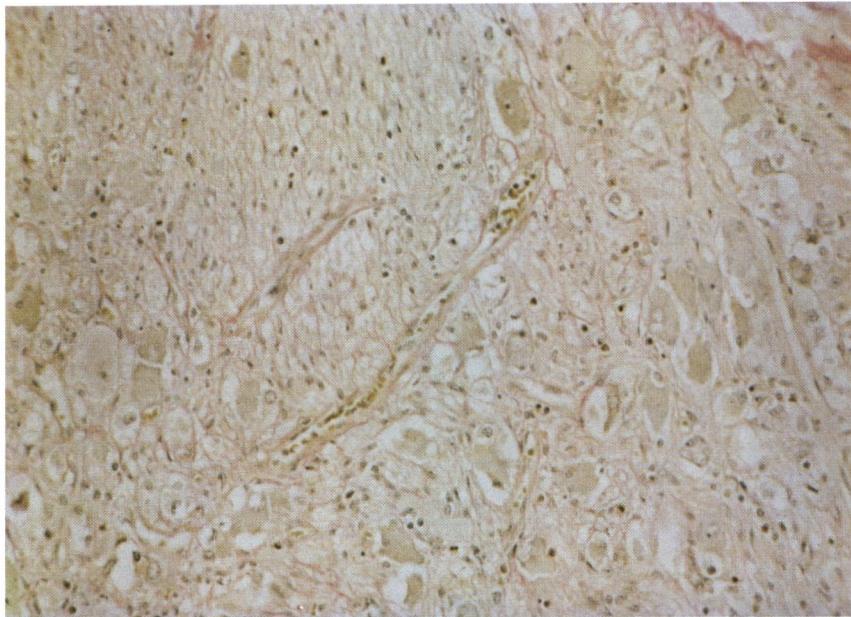
Fig. 2. Cystoscopy reveals a large mass on the right lateral wall, which has a smooth and partly papillomatous surface.



Fig. 7. Macroscopic appearance of the resected tumor. The tumor is very hard and the cut surface has gray and yellow-brown colour, 5×5×3 cm in size.



(A)



(B)

Fig. 8. Histological findings; (A) low power view with H & E stain. (B) low power view with van Gieson stain. Both sections show well differentiated ganglion cells and neuron sheath cells without mitosis.

考 察

神経節細胞腫は神経芽細胞腫などと同じく neural crest より分化発生したもので、神経節細胞腫は神経芽細胞腫の良性型または成熟型と考えられている¹⁾。神経節細胞腫の発生頻度は、Stowens²⁾によれば神経芽細胞腫 110例、神経節神経芽細胞腫 17例に対し、神経節細胞腫 109例を集計して、神経芽細胞腫とはほぼ同頻度を示している。一方神経節細胞腫の発生部位では、Stout³⁾の243例の集計で、135例(55%)が腹部、62例(25%)が縦隔部、24例(10%)が頸部、4例が眼窩および眼瞼、その他が18例である。腹部に発生した135例中、後腹膜腔に29例が認められているが、膀胱に発生した報告はない。一方、Wyman⁴⁾により膀胱尿管に発生した神経節細胞腫の1例が報告されており、自験例は2例目に相当する。

神経芽細胞腫が若年者に多く、神経節細胞腫が年長者に多いのは広く知られているが^{2,3,5,6)}、Hamilton and Koop⁷⁾はこの両者の発生年齢の違いに言及し、neural crest tumor は神経芽細胞腫ではじまり、ある期間たつと神経節細胞腫に成熟するのかもしれないと述べている。自験例も62歳で、よく成熟した神経節細胞腫の症例であり、この見解と一致している。

神経芽細胞腫の多くがカテコールアミンを産生分泌する機能を持つことは広く認められているが^{7,8,9)}、神経節細胞腫がこのような activity を有するかどうかは、まだ意見の一致をみない。Hamilton and Koop⁷⁾の7例の神経節細胞腫のうち4例の尿中 VMA の上昇を認めているが、自験例においては、尿中 VMA は陰性であった。

なお本症例において、術前の CEA 値の軽度上昇が認められ、腫瘍摘除後正常に復したことは、何らかの関連があったものと考えられ、興味深い点であるが、今後の検討を必要とする点でもある。

ま と め

62歳の男子の膀胱に原発した神経節細胞腫の1例を報告した。本症例においてカテコールアミン分泌は認められなかったが、CEA の軽度上昇を認めた。

なお本論文の要旨は第89回関西地方会において講演した。

文 献

- 1) Baty JA, Ogilvie ND and Symons M: Retroperitoneal ganglioneuroma. *Brit J Surg* **49**: 409~414, 1961~1962
- 2) Stowens D: Neuroblastoma and related tumors. *Arch Pathol* **63**: 451~459, 1957
- 3) Stout AP: Ganglioneuromas of the sympathetic nervous system. *Surg Gyn Obst* **84**: 101~110, 1947
- 4) Wyman HE et al: Ganglioneuroma of bladder. *J Urol* **63**: 526~532, 1950
- 5) Marsten HB and Steward JK: Recent results in cancer research, 13. Springer-Verlag, Berlin, Heudeberg, New York, 1968
- 6) Mcfarland JP and Sappington SW: A ganglioneuroma in the neck of a child. *Am J Path* **11**: 492~448, 1935
- 7) Hamilton JP and Koop CE: Ganglioneuromas in children. *Surg Gyn Obst* **121**: 803~812, 1935
- 8) Greenberg RE and Gardner LI: Catecholamine metabolism in a functional neural tumor. *J Clin Invest* **39**: 1726~1736, 1969
- 9) Voorhess ML, Pickett LK and Gardner LI: Functioning tumors of neural crest origin in childhood. *Am J Surg* **106**: 33~35, 1963

(1981年8月17日受付)