

CTガイド下針生検で診断・治療方針が確定した 椎体の圧排を伴った後腹膜神経鞘腫の1例

島田恭輔^{1)*} 久保田諭史¹⁾ 高山昇平¹⁾
佐藤良紀²⁾ 小林翔太²⁾ 駒津光久¹⁾

- 1) 信州大学医学部内科学第四教室 (糖尿病・内分泌代謝内科)
2) 信州大学医学部附属病院臨床検査部

Retroperitoneal Schwannoma with Vertebral Body Compression Whose Diagnosis and Treatment Policy were Confirmed by CT-guided Needle Biopsy

Yasuho SHIMADA¹⁾, Satoshi KUBOTA¹⁾, Shohei TAKAYAMA¹⁾
Yoshinori SATO²⁾, Shota KOBAYASHI²⁾ and Mitsuhsa KOMATSU¹⁾

- 1) *Department of Medicine (Diabetes, Endocrinology and Metabolism),
Shinshu University School of Medicine*
2) *Department of Laboratory Medicine, Shinshu University Hospital*

A 20-year-old female patient with no noticeable medical or surgical history was admitted to our hospital with a mass in her abdomen. She had no symptoms. Laboratory parameters including tumor markers and hormones were all within the normal range. Computed tomography demonstrated a solid mass in the right retroperitoneum. The tumor had compressed the vertebra. Usually, retroperitoneal tumors may be adrenocortical cancer or pheochromocytoma and should not be biopsied. Surgery is often performed to treat large tumors. We planned to have surgery in this case, but the risk of surgery was too high because the tumor had compressed the vertebra, so we decided to perform a needle biopsy. The pathological result was a diagnosis of benign schwannoma. This case received a follow-up examination. If the risk of surgery is too high, needle biopsy should be considered because it is useful for diagnosis and decisions about treatment policy. *Shinshu Med J 70: 183–188, 2022*

(Received for publication December 24, 2021; accepted in revised form January 18, 2022)

Key words: retroperitoneal tumor, schwannoma, needle biopsy

後腹膜腫瘍, 神経鞘腫, 針生検

I 緒 言

神経鞘腫は外胚葉性腫瘍で、頭や首、四肢に好発するが、後腹膜に発生することは稀である¹⁾。後腹膜腫瘍の原因としては神経鞘腫より副腎癌や褐色細胞腫の頻度が高く、これらの可能性があるために生検は一般的に禁忌である。一方で後腹膜神経鞘腫は良性腫瘍であることが多く、外科的切除で根治が望めるが、発生部位によっては極めてリスクの高い手術になる。良性

腫瘍であれば外科的切除のリスクが高い場合は経過観察の選択肢も生じるため、術前に正確な診断を行うことが望まれる。われわれは、椎体への圧排を伴った後腹膜腫瘍に対して治療方針を決定するためにCTガイド下生検を行い神経鞘腫の診断が確定し、リスクの高い切除術を回避できた症例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

症例：20歳、女性。

既往歴：なし。

現病歴：X-1年12月、健康診断の胸部X線写真で腹部に腫瘤影を指摘された。X年1月に前医を紹介受

* Corresponding author: 島田恭輔 〒390-8621
松本市旭3-1-1 信州大学医学部内科学第四教室
(糖尿病・内分泌代謝内科)
E-mail: yshimada@shinshu-u.ac.jp

表1 血液・尿検査所見

血算		
白血球	5,780	/ μ l
ヘモグロビン	12.9	g/dl
血小板	31.9×10^4	/ μ l
生化学		
UN	11.5	mg/dl
Cr	0.68	mg/dl
AST	14	U/l
ALT	9	U/l
ALP	84	U/l
LD	142	U/l
CRP	0.01	mg/dl
腫瘍関連		基準範囲
AFP	2.5 ng/ml	0.0-10.0
CEA	0.8 ng/ml	0.0-3.4
CA19-9	7.7 U/ml	0.0-37.0
PIVKA2	24 mAU/ml	0-39
血中内分泌検査 早朝安静空腹時		基準範囲
コルチゾール	9.4 μ g/dl	1.0-15.0
ACTH	15.0 pg/ml	7.2-63.3
アルドステロン	113.0 pg/ml	35.7-240.0
活性型レニン濃度	7.9 pg/ml	3.2-36.3
DHEA-S	198 μ g/dl	92-399
蓄尿検査		基準範囲
アドレナリン	15.0 μ g/日	1.1-22.5
ノルアドレナリン	82.0 μ g/日	29.2-118.0
ドパミン	620 μ g/日	100-1000
メタネフリン	0.17 mg/日	0.05-0.20
ノルメタネフリン	0.16 mg/日	0.10-0.28
遊離コルチゾール	60.3 μ g/日	11.2-80.3

診し、造影CTが施行され、後腹膜腫瘍を指摘された。確定診断の目的でCTガイド下針生検が予定されたが、褐色細胞腫やパラガングリオーマの可能性が否定できないことから、内分泌学的評価目的にX年2月に当科に入院となった。

現症：身長149.4 cm，体重43.8 kg，脈拍70 bpm，血圧124/76 mmHg，体温36.3℃。

身体所見：眼瞼結膜に貧血はなく，眼球結膜に黄染を認めない。満月様顔貌などのクッシング徴候を認めない。甲状腺腫大はない。心雑音やラ音を聴取せず，腹部には特記所見はなかった。

血液・尿検査所見（表1）：血算および生化学に異常所見を認めなかった。早朝安静空腹時のコルチゾー

ル9.4 μ g/dl，ACTH 15.0 pg/ml，アルドステロン 113.0 pg/ml，活性型レニン濃度7.9 pg/ml，DHEA-S 198 μ g/dlと明らかな異常は見られなかった。蓄尿検査において，カテコールアミンとその代謝産物も基準範囲内であった。1 mg デキサメタゾン抑制試験において，コルチゾール0.9 μ g/dl，ACTH 2.5 pg/mlと抑制を認め，クッシング症候群は否定された。

画像所見（図1）：胸部X線写真では右横隔膜直下に腫瘤影を認めた。腹部単純CTでは椎体右縁に55×61 mm 大の腫瘤を認め，L1椎体と接している。¹⁸F-FDG-PETではSUVmax3.1の淡い集積を認め，¹²³I-MIBG シンチグラフィでは有意な集積は見られなかった。MRIでは，大動脈の背側と椎体前面沿いに

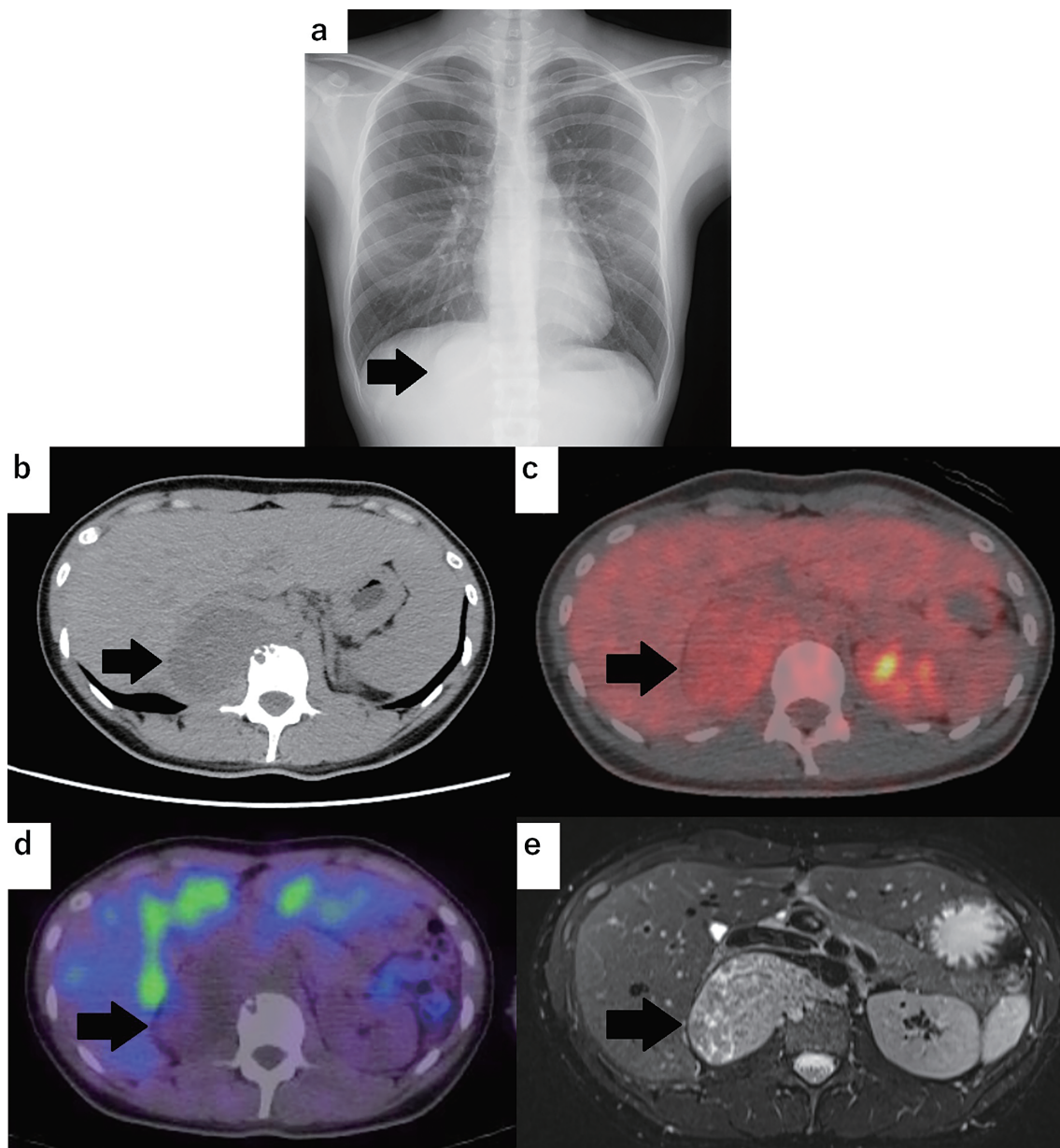


図1 画像所見

- a : 胸部X線写真
右横隔膜直下に腫瘤を認める (黒色矢印)。
- b : 腹部単純 CT
椎体右縁に55×61 mm 大の腫瘤を認め、L1椎体の圧排所見を認める (黒色矢印)。
- c : ¹⁸F-FDG-PET
SUVmax3.1の淡い集積を認める (黒色矢印)。
- d : ¹²³I-MIBG シンチグラフィ
腫瘍への有意な集積は見られない (黒色矢印)。
- e : MRI (T2強調画像)
椎体右縁に腫瘤を認める (黒色矢印)。腫瘍は大動脈の背側と椎体前面沿いに対側の後腹膜腔へと進展している。L1椎体を圧排している所見を認めるが、椎間孔とは離れている。

対側の後腹膜腔への腫瘍の進展を認める。L1椎体を圧排している所見を認めるが、椎間孔とは離れている。

副腎癌はクッシング症候群を呈することも多いが、

本症例のようにコルチゾール分泌に異常がないことも多く、切除標本による病理学的確定診断が求められる。

また、¹²³I-MIBG シンチグラフィは褐色細胞腫に対す

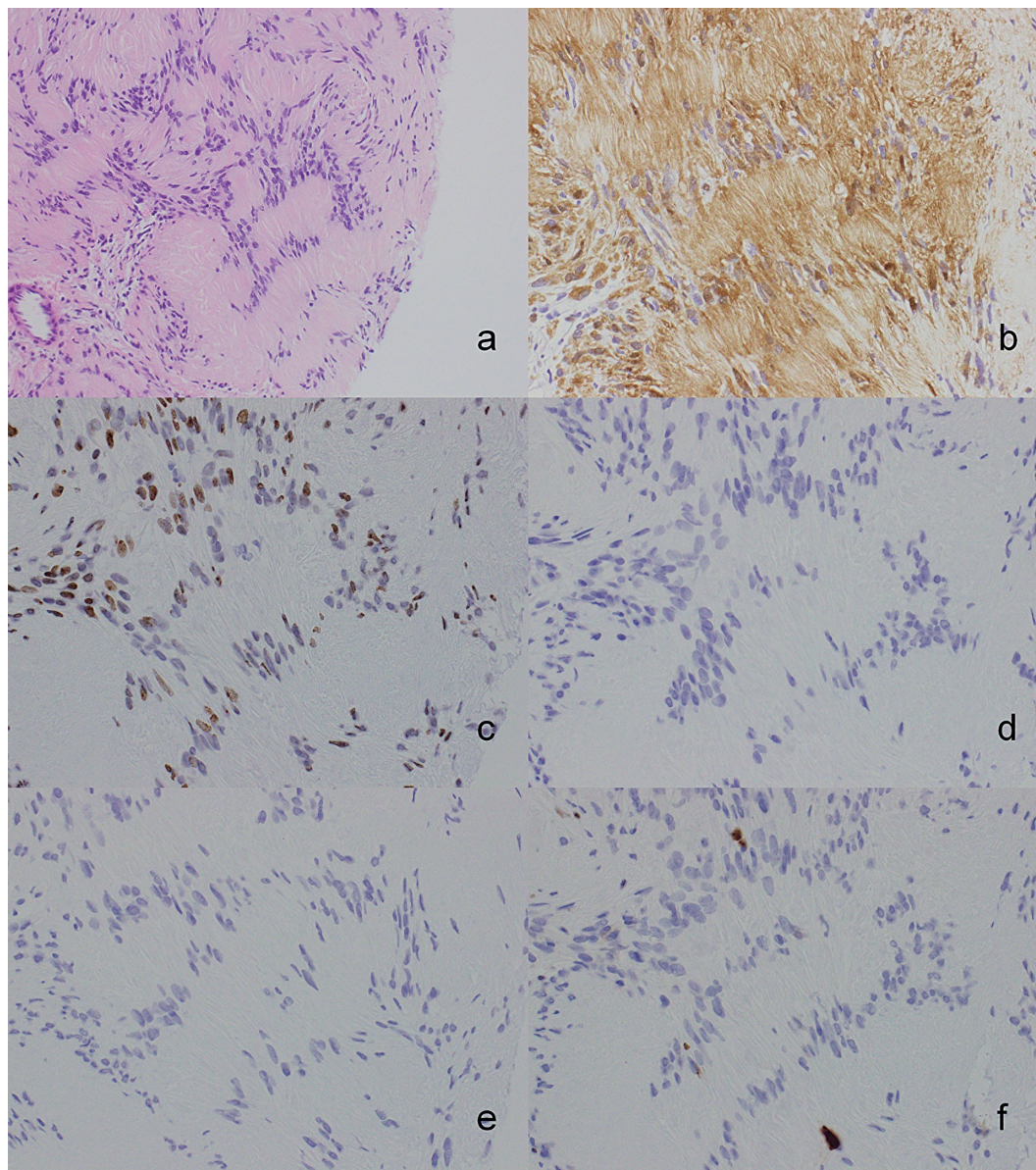


図2 針生検組織の病理所見

HE染色(×20)(a)では、細胞核の索状配列やVerocay小体を認める紡錘形細胞を認める。異型は軽度で核分裂像はほとんど見られず、壊死組織も見られなかった。免疫染色(×40)ではS-100(b)およびH3K27me3(c)は陽性、chromogranin A(d)およびsynaptophysin(e)は陰性であった。Ki-67は1%前後であった(f)。

る特異度は95%以上と高いものの²⁾、感度は90%程度であり、取り込み陰性からは褐色細胞腫は否定できない³⁾。以上から神経節細胞腫が疑われるも、褐色細胞腫や副腎癌を否定しきることができず、外科手術による摘出が検討された。しかし、椎体の同時切除も必要となり、術後に下半身麻痺の可能性は高く、腫瘍と椎体の間に分節動脈が走行していたことから出血による術中死のリスクもあると判断された。また、良性腫瘍の可能性もあり、手術のリスクと得られる効果には明らかなギャップがあると考えられた。本症例におい

ては針生検による診断が有用であると考え、CTガイド下に針生検を行う方針とした。褐色細胞腫・パラガングリオーマの可能性も完全に否定できないことから、術中に予期しない腫瘍細胞からのカテコールアミンの過剰放出に対応するため α_1 アドレナリン受容体拮抗薬であるドキサゾシン20mg/日の術前内服を行った上で、腹臥位にて右背部からL1椎体の右横突起の直下を狙ってCTガイド下生検を行った。

病理所見(図2):細胞核の索状配列やVerocay小体を認める紡錘形細胞腫瘍であった。異型は軽度で

核分裂像はほとんど見られず、壊死組織も見られなかった。免疫染色ではS-100およびH3K27me3は陽性、chromogranin A および synaptophysin は陰性であった。Ki-67は1%前後であった。

以上の所見から良性の神経鞘腫の診断となった。

III 考 察

椎体への圧排を伴った後腹膜腫瘍に対してCTガイド下で針生検を行った症例である。後腹膜腫瘍を副腎偶発腫の観点から考察すると、手術を施行された副腎偶発腫のうち、副腎皮質癌と褐色細胞腫で23.4%を占めている⁴⁾。副腎癌や褐色細胞腫の可能性がある場合には、生検は播種や高血圧クリーゼのリスクのために一般的に禁忌である⁵⁾。また、副腎皮質癌に関しては生検による診断精度も高くない⁶⁾。褐色細胞腫においては、MIBGシンチグラフィで集積がなく、生化学的にもカテコールアミンおよびその代謝産物に異常を認めなかった症例の報告もある⁷⁾。以上のことから副腎皮質癌や褐色細胞腫の術前評価は困難なことが多く、腫瘍径が4cmを超える場合は副腎皮質癌の可能性が高くなることから外科的切除が推奨される⁴⁾。臨床的には悪性の可能性を考慮し、大きい腫瘍の場合には副腎皮質癌や褐色細胞腫を念頭に対応することが現実的である。

病理学的に神経鞘腫と診断された後腹膜腫瘍の術前診断は32.2%で副腎皮質癌が考えられていた⁸⁾。また、神経鞘腫は頭頸部や四肢に多く見られ、後腹膜での発生頻度は0.75~2.6%程度と稀である⁹⁾。本症例においても、良性腫瘍であることが多い神経鞘腫を想起す

るよりは、後腹膜腫瘍として頻度が高い副腎皮質癌や褐色細胞腫の可能性を考えて治療方針を立案した。

後腹膜腫瘍の針生検は、副腎皮質癌や褐色細胞腫が否定できない点から原則禁忌と考えられるが、針生検を行った報告も存在し、神経鞘腫においては、壊死のようなアグレッシブな画像所見を呈しても、針生検による診断で手術を行わずに経過観察が可能であった症例報告もある⁸⁾。さらに開腹生検の播種のリスクが32%であるのに対して針生検でのリスクは0.8%と低いと報告されている¹⁰⁾。

本症例においては、副腎皮質癌や褐色細胞腫を否定しきれないながらも積極的に支持する所見もなく、良性腫瘍である可能性が考慮された。また、手術リスクも高く、リスクと得られる効果を考慮し針生検を行った。病理結果は良性の神経鞘腫の診断であったため、腫瘍の大きさや性状の経過観察を行っていく方針とした。

IV 結 語

後腹膜腫瘍は悪性腫瘍の可能性も十分に考慮する必要があるが、良性疾患も発生しうる。脊髄に近い部位で発生しうることから、時に本症例のように手術リスクが極めて高くなる場合がある。外科的摘出が困難な広がりをしめす後腹膜腫瘍は、摘出手術によるリスクと得られる効果を吟味し、各科と連携し総合的に判断していく必要がある。

本症例の要旨は日本内科学会第149回信越地方会にて報告した。

文 献

- 1) Daneshmand S, Youssefzadeh D, Chamie K, et al: Benign retroperitoneal schwannoma: a case series and review of the literature. *Urology* 62: 993-997, 2003
- 2) Swensen SJ, Brown ML, Sheps SG, et al: Use of ¹³¹I-MIBG scintigraphy in the evaluation of suspected pheochromocytoma. *Mayo Clin Proc* 60: 299-304, 1985
- 3) Cecchin D, Lumachi F, Marzola MC, et al: A meta-iodobenzylguanidine scintigraphic scoring system increases accuracy in the diagnostic management of pheochromocytoma. *Endocr Relat Cancer* 13: 525-533, 2006
- 4) Mantero F, Terzolo M, Arnaldi G, et al: A survey on adrenal incidentaloma in Italy. *J Clin Endocrinol Metab* 85: 637-644, 2000
- 5) Habscheid W, Pfeiffer M, Demmrich J, Muller HA: Puncture track metastasis after ultrasound-guided fine-needle puncture biopsy. A rare complication? *Dtsch Med Wochenschr* 115: 212-215, 1990
- 6) Mazzaglia PJ, Monchik JM: Limited value of adrenal biopsy in the evaluation of adrenal neoplasm: a decade of experience. *Archives of Surgery* 144: 465-470, 2009
- 7) 勝又有記, 高井優季, 黒本暁人, 他: MIBGシンチグラフィ陰性褐色細胞腫クリーゼの一例. *日泌会誌* 110: 206-210, 2019

- 8) Wilson MP, Katlariwala P, Huang J, Low G, Wiebe E : Benign adrenal and suprarenal retroperitoneal schwannomas can mimic aggressive adrenal malignancies : case report and review of the literature. *Intractable Rare Dis Res* 9 : 156-162, 2020
- 9) Harada TL, Nagao G, Aoyagi T, et al : Giant retroperitoneal schwannoma in a 52-year-old man. *Radiol Case Rep* 13 : 810-814, 2018
- 10) Barrientos-Ruiz I, Ortiz-Cruz EJ, Serrano-Montilla J, Bernabeu-Taboada D, Pozo-Kreilinger JJ : Are Biopsy Tracts a Concern for Seeding and Local Recurrence in Sarcomas ? *Clin Orthop Relat Res* 475 : 511-518, 2017

(R 3. 12. 24 受稿 ; R 4. 1. 18 受理)
