

症例報告

食道神経鞘腫の1 治験例

金沢大学心肺・総合外科

平沼知加志 大村 健二 川上 和之
塚山 正市 吉羽 秀麿 渡邊 剛

食道良性腫瘍のなかでも極めて頻度の低い神経鞘腫の1 例を経験したので報告する。症例は64 歳の女性。風邪症状のため近医受診したところ、胸部 X 線写真にて縦隔腫瘤を指摘された。胸部 CT 検査では、中縦隔に腫瘤を認めた。また胸部 MRI 検査では、同部位に T1 強調像にてやや低信号域、T2 強調像にて高信号域を呈し、Gd で造影される充実性腫瘍を認めた。EUS にて腫瘍は第4 層と連続性を有し、内部エコーは hypoechoic で均一だった。以上より食道平滑筋腫と診断し、完全胸腔鏡下に腫瘍核出術を施行した。腫瘍は 3.5×3.0×2.0cm、灰白色の被膜を有し、断面は均一な黄白色を呈していた。病理組織学的に腫瘍細胞は紡錘形細胞の束状増生、核の柵状配列が認められた。免疫染色では α-smooth muscle actin 陰性で、S-100 陽性、NSE 弱陽性であり、食道神経鞘腫と診断された。術後は順調であった。

はじめに

食道の良性腫瘍は比較的まれであり、そのほとんどは平滑筋腫である。今回われわれは食道良性腫瘍のなかでも頻度の低い神経鞘腫の1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：64 歳，女性

主訴：咳嗽

既往歴：1982 年，僧帽弁狭窄症にて手術施行。

家族歴：特になし。

現病歴：上記手術後，近医にて経過観察されていた。2001 年3 月，感冒様症状を認めたため近医受診したところ，胸部 X 線写真にて縦隔腫瘤を指摘され，精査加療目的で当科に紹介入院となった。

入院時現症：身長 151.5cm，体重 56.5kg。栄養状態良好。貧血，黄疸認めず，入院時には咳嗽，喀痰，胸痛，嚥下困難などの胸部症状は認めなかった。血液生化学検査では特に異常を認めなかった。なお，腫瘍マーカーでは NSE が 11.5 ng/dl と軽度上昇していた。

胸部 X 線写真：正面像で右第2 弓と重なる辺縁整の円形腫瘤を認め，側面像では気管から胸椎体前面に及び中縦隔に辺縁整な径 5cm の腫瘤影を認めた。

食道造影検査：胸部中部食道に粘膜面が平滑な内腔の狭窄を認め，食道の非上皮性腫瘍，もしくは壁外性の圧排が強く疑われた (Fig. 1)。

胸部 CT 検査：中縦隔に食道との境界が不明瞭で辺縁整な径 3cm の腫瘤を認めた (Fig. 2)。

胸部 MRI 検査：右中縦隔に T1 強調像にてやや低信号域，T2 強調像にて高信号域を呈し，ガドリウムで徐々に造影される充実性腫瘍を認めた (Fig. 3)。

上腹部内視鏡検査：門歯より 22 ~ 25cm の部に正常粘膜に覆われた平滑な隆起を認めた (Fig. 4 A)。

超音波内視鏡検査：腫瘍は第4 層と連続性があり，内部エコーは比較的均一な低エコーで第5 層は保たれていた (Fig. 4B)。

以上より食道平滑筋腫と診断して，胸腔鏡下に腫瘍核出術を施行した。

手術所見：分離換気全身麻酔下，左側臥位で右中腋窩線第6 肋間に 10mm，前腋窩線第5 肋間，後

< 2003 年 5 月 27 日受理 > 別刷請求先：平沼知加志
〒921 8105 金沢市平和町 3 7 3 金沢市立病院外
科

腋窩線第4肋間，中腋窩線第3肋間におのおの5mmのポートを挿入した．奇静脈をステイプラーにて切離し，食道を遊離しテーピングを行った後，鈍的，鋭的に剥離を進めて腫瘍を核出した．経鼻胃管を用いた食道内生理食塩水注入によりリークテストを行い，粘膜損傷がないことを確認し，食

Fig. 2 Chest computed tomography showed a homogenous mass in the mediastinum.

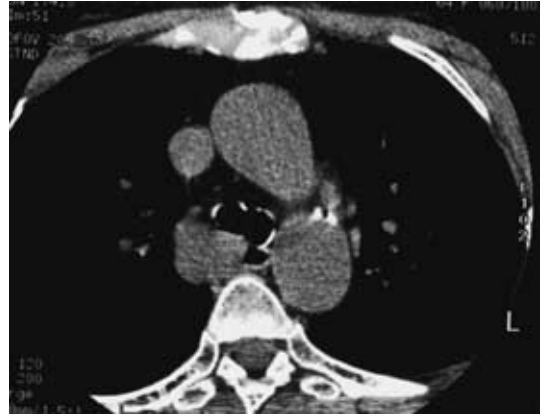


Fig. 1 Esophagogram showed a smooth and round mass in the middle intra-thoracic esophagus.



Fig. 3 The esophageal tumor was slightly low intensity on T1 weighted MRI (A) image and high intensity on T2 weighted image (B)

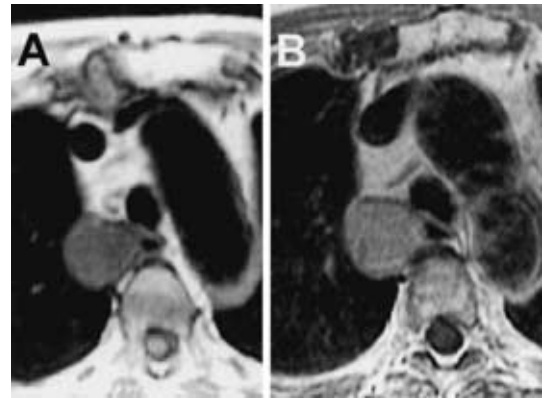
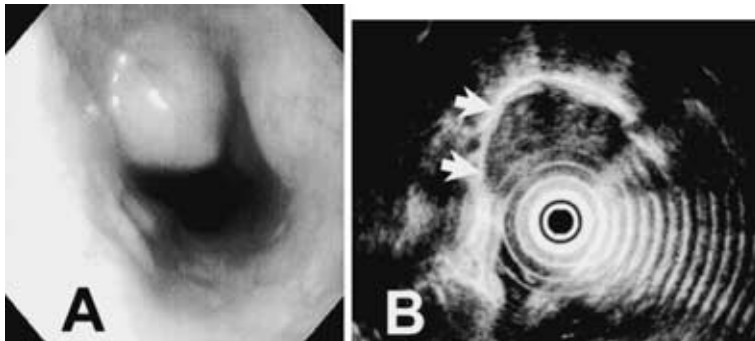


Fig. 4 A) Endoscopic examinations revealed a submucosal tumor. B) Endoscopic ultrasonography showed a homogenous low echoic mass.

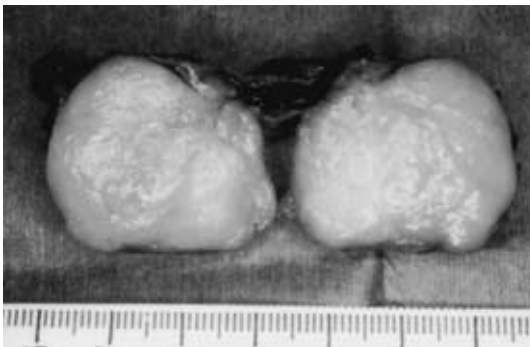


道筋層を吸収性モノフィラメント(3 0 PDS II™)にて連続縫合した。

切除標本：腫瘍は3.5×3.0×2.0cmで弾性硬、灰白色の被膜を有し、断面は均一な黄白色を呈していた(Fig. 5)。

病理学的検査：腫瘍細胞は細長い核を持つ紡錘形細胞で束状増生がみられ、所々に核の柵状配列が認められた。免疫染色ではc-kit protein, CD34, desmin, HHF35, α -smooth muscle actin 陰性で、S-100 蛋白陽性, NSE 弱陽性であり、良性の食道神

Fig. 5 Resected specimen showed that the tumor was 3.5 × 3.0 × 2.0 cm in size and had a grayish white capsule.



経鞘腫と診断された(Fig. 6)。

術後は順調に経過し19日目に退院となった。術後18か月を経過した現在、特に問題なく日常生活を送っている。

考 察

食道良性腫瘍は比較的まれである。組織別には平滑筋腫が最も多く、ついで嚢胞とされ、神経鞘腫はさらにまれである^{1,2)}。検索した限りでは学会報告例、自験例を含めて23例の報告³⁾⁻¹⁰⁾のみであり、まれな疾患といえる(Table 1)。

本法報告例を検討すると、年齢は10~79歳(平均55歳)で50歳代に最も多く、性別では男女比が10:13とやや女性が多かった。発生部位別では、発生部位ではCeが4例、Utが5例、Mtが7例、Ltが5例、Aeが2例であり、好発部位を認めなかった。Ltに好発する食道平滑筋腫^{11,12)}とは対照的である。特異的な臨床症状があるとは言えず、嚥下障害もおよそ3分の1の症例にみられるのみである。無症状の症例が3分の1強を占めている。なお、腫瘍の大きさは0.5cm以下から10cmまでと様々であった。

術前診断はCT, MRIなどによってなされる。CTでは、造影剤の使用により腫瘍全体もしくは辺縁がenhanceされる。またMRIでは、T1強調

Fig. 6 A) Histopathological findings showed the tumor composed of spindle cells. B) S-100 protein was positive by immunohistochemical examination.

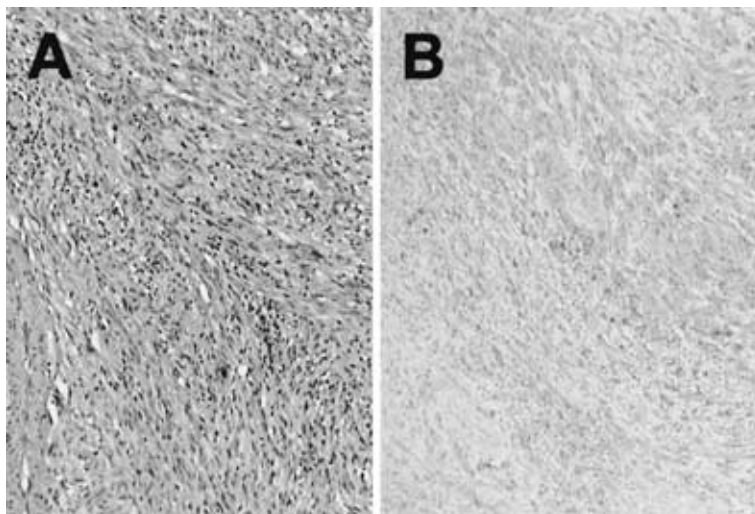


Table 1 Summary of 23 cases of esophageal schwannoma

No.	Author	Age	Sex	Symptom	Location	Size (cm)	Preoperative diag	Operative procedure	malignancy
1	Hujjeda (1973)	10	M	Lt. ant. neck swelling, Dysphagia	Ce	4.5 × 4.5 × 3.5	Thyroid or esophageal tumor	Enucleation	
2	Kato (1981)	37	F	None(abnormal shadow on chest X-p)	Lt	10 × 6 × 6	Mediastinal tumor (pericardial cyst)	Enucleation	
3	Koizumi (1987)	55	M	None	Ae	2.2 × 1/5 × 1.0	Esophageal submucosal tumor	Endoscopic enucleation	
4	Konisi (1989)	79	M	No reason	Mt	0.5≥	Esophageal submucosal tumor	Endoscopic enucleation	
5	Sakuramachi (1992)	58	F	Dysphagia	Mt	8.0 × 3.5 × 2.5	Esophageal submucosal tumor	Enucleation	
6	Iwata (1992)	56	F	None(abnormal shadow on chest X-p)	Ut	4.8 × 4.2 × 3.0	Esophageal leiomyoma	Enucleation	+
7	Iwata (1992)	75	F	Cough, Dyspnea	Ut-Mt	10.0 × 8.0 × 5.0	Esophageal leiomyosarcoma	Enucleation	
8	Nishinaka (1995)	52	F	Dysphagia, Chest discomfort	Mt	7 × 7 × 5	Mediastinal tumor (bronchial cyst)	Enucleation	
9	Morita (1996)	57	F	Dysphagia	Ut	4.0 × 3.5 × 2.7	Esophageal submucosal tumor	Enucleation	+
10	Ishida (1997)	66	F	None(abnormal shadow on chest X-p)	Lt	5.0 × 4.1 × 3.5	Post. Mediastinal tumor	Enucleation	
11	Nakamura (1998)	59	M	Hemoptum	Mt	5.0 × 3.5 × 2.5	Mediastinal tumor (bronchial cyst)	Thoracoscopic enucleation	
12	Ohno (1998)	49	F	Dysphagia	Ce	3.0 × 1.5 × 1.0	Esophageal leiomyoma	Enucleation	
13	Ide (1998)	59	M	Hemoptum	Mt	4 × 3 × 2.8	Mediastinal tumor (bronchial cyst)	Thoracoscopic enucleation	
14	Suzuki (1999)	50	F	Dysphagia, Ant. neck swelling	Ce		Neurogenic tumor	Enucleation	
15	Akiyama (1999)	56	M	None	Lt	2.5 × 2.0 × 1.7	Esophageal submucosal tumor	Thoracoscopic enucleation	
16	Inoue (1999)	66	M	None	Lt	6.8 × 6.0 × 4.8	Esophageal leiomyosarcoma	Enucleation	
17	Saito (1999)	63	F	Dysphagia	Ut	7.5	Esophageal submucosal tumor	Enucleation	
18	Kanehira (2000)	25	F	Dysphagia	Ut	About 4	Esophageal leiomyoma	Thoracoscopic enucleation	
19	Nishizawa (2000)	48	M	None	Ae	2.2 × 1.8	Granular cell tumor	Esophagogastrectomy	
20	Nagai (2000)	71	M	None	Ce-Ut		Esophageal submucosal tumor	Enucleation	
21	Murase (2001)	49	F	None(abnormal shadow on chest X-p)	Mt	8.2 × 5.8 × 3.7	Esophageal submucosal tumor	Enucleation	+
22	Sato (2001)	56	M	Chest discomfort	Lt	7 × 6	Esophageal, pericardial or phrenic sarcama	Esophagogastrectomy	
23	Our case (2002)	64	F	Cough	Mt	3.5 × 3.0 × 2.0	Esophageal leiomyoma	Thoracoscopic enucleation	

像にてやや低～高信号,T2強調像にて高信号を呈する。しかし,これらの所見は神経鞘腫に特徴的なものではない。報告例をみても,術前診断は食道粘膜下腫瘍,平滑筋腫や縦隔腫瘍であり,術前正診できた症例は報告されていない。自験例では,これらの検査に加えて超音波内視鏡検査を施行したが,腫瘍が第4層と連続していたことより食道平滑筋腫と診断された。したがって画像診断所見のみで食道神経鞘腫と診断することは極めて困難であり,病理組織学的診断に依存せざるを得ないと考えられる。一般に神経鞘腫の組織学的特徴として,紡錘形の腫瘍細胞が蜜に並ぶ渦巻状,柵状配列,もしくは疎な細胞密度の腫瘍細胞の網状配列が挙げられる。さらに,免疫組織化学的染色にてS-100蛋白が陽性となる。中島¹³⁾によると,神経鞘細胞ではS-100蛋白産生を示し,良性神経鞘腫において100%,悪性では70%にS-100蛋白が証明されている。悪性化に伴いS-100蛋白産生の消失が認められるが,診断の一助になると考えられる。

悪性神経鞘腫は臨床診断は極めて困難であるが,組織学的にも決め手となる所見は少ない¹⁴⁾。核異形性が強く辺縁部に浸潤を認めたものを悪性神経鞘腫と診断するが,悪性所見を認めたものは本邦食道神経鞘腫報告例23例中3例のみだった。

食道神経鞘腫には化学療法,放射線療法の効果は望めず,被膜を含めた外科的切除が行われる。近年,胸腔鏡下に行う食道粘膜下腫瘍核出術が普及しつつある¹⁰⁾¹⁵⁾。本術式は,術後合併症の防止や疼痛軽減の観点から有用だと思われる。我々は,経鼻胃管を用いて術中リークテストを行った。これによって粘膜損傷の有無の確認と対処が可能になり,安全性が高まると考えている。

なお,神経鞘腫は組織学的に良性であり,一般に予後は良好である。しかし,悪性化¹⁴⁾の報告もみられることから術後十分な経過観察が望ましいと考えられる。

文 献

- 1) Moersch HJ, Harrington SW : Benign tumor of the esophagus. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 53 : 800 817, 1944
- 2) Plachta A : Benign tumor of the esophagus, Review of literature and report of 9 cases. *Am J Gastroenterol* 38 : 639 652, 1962
- 3) 藤枝憲二, 田中 倬, 今井 浩 : 頸部食道に発生したNeurinomaの1例. *臨小児医* 21 : 54 58, 1973
- 4) 加藤邦隆, 志田 寛, 森本雅己ほか : 食道壁内神経鞘腫の1治験例. *日胸臨* 41 : 156 160, 1981
- 5) 小泉博義, 青山法夫, 石橋 信ほか : 食道粘膜下腫瘍に対する内視鏡的摘出術の工夫 15症例の検討から. *消内視鏡の進歩* 31 : 70 73, 1987
- 6) 小西 大, 山口 肇, 吉田茂昭ほか : 食道粘膜下腫瘍の内視鏡的検討. *消内視鏡の進歩* 35 : 112 115, 1989
- 7) 西中秀和, 原 裕介, 田中雅夫 : 壁外に大きく発育した食道神経鞘腫の1例. *日臨外医会誌* 56 : 1362 1366, 1995
- 8) 森田一郎, 虫明寛行, 篠崎洋二ほか : 悪性所見を伴う食道粘膜下神経鞘腫の1治験例 本邦報告例の検討. *外科* 58 : 506 510, 1996
- 9) 石田敦久, 正木久男, 田淵 篤ほか : 食道神経鞘腫の1例. *日臨外医会誌* 58 : 2033 2037, 1997
- 10) 中村昭博, 伊藤重彦, 井出誠一郎ほか : 胸腔鏡下手術により切除した食道神経鞘腫の1例. *日消外会誌* 31 : 2231 2234, 1998
- 11) Seremetis MG, Lyons WS, Deguzman VC et al : Leiomyoma of the esophagus ; An analysis of 838 cases. *Cancer* 38 : 2166 2177, 1976
- 12) 細川俊彦, 大谷洋一, 薬師寺公一ほか : 巨大食道平滑筋腫の1例 本邦食道平滑筋腫354例の検討. *日臨外医会誌* 46 : 954 959, 1985
- 13) 中島 孝 : 神経組織特異蛋白(S-100ならびにNSE蛋白)による腫瘍の免疫組織科学的検索とその診断への応用. *病理と臨* 1 : 115 124, 1983
- 14) 千葉雅史, 上杉 孝, 神保幸一 : 悪性神経鞘腫 全身に多発し, 化学免疫療法により寛解をみた1例. *日皮会誌* 90 : 347 358, 1980
- 15) 出江洋介, 井上晴洋, 竹下公矢ほか : 胸腔鏡下に核出しえた食道平滑筋腫の2例. *日胸外会誌* 43 : 216 220, 1995

A Case of the Esophageal Schwannoma

Chikashi Hiranuma, Kenji Omura, Kazuyuki Kawakami, Shouichi Tsukayama,
Hidemaro Yoshiba and Go Watanabe

Department of General and Cardiothoracic Surgery, Kanazawa University School of Medicine

We report an extremely rare case of an esophageal schwannoma. A 64-year-old woman was admitted to hospital after a mediastinal tumor was found on a chest X-ray taken at another hospital. A chest CT, chest MRI and endoscopic ultrasonography showed a solid tumor in the esophagus, the patient was diagnosed as having an esophageal leiomyoma. Thoracoscopic enucleation was performed. The tumor was 3.5 × 3.0 × 2.0 cm in size and had a grayish white capsule. Histopathologically, the tumor was composed of spindle cell bundles and showed a palisade arrangement of the nucleus. Immunohistochemical examinations were negative for α -smooth muscle actin and positive for S-100 protein. Thus, the tumor was diagnosed as an esophageal schwannoma.

Key words : esophageal schwannoma, esophageal submucosal tumor

[Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 1487 - 1492, 2003]

Reprint requests : Chikashi Hiranuma The Department of Surgery, Kanazawa Municipal Hospital
3 7 3 Heiwamachi, Kanazawa City, 921 8105 JAPAN
