

症 例

経直腸 EUS-FNA により診断し得た脊索腫の 1 例

小原 勇貴¹⁾, 萩生田 美穂¹⁾, 十文字 礼子¹⁾, 清水 道弘¹⁾,
吉田 幸司¹⁾, 笹生 俊一²⁾, 春日井 聡³⁾

八戸赤十字病院 検査技術課¹⁾, 病理診断科²⁾, 消化器内科³⁾

Chordoma diagnosed by transrectal endoscopic
ultrasound-guided fine-needle aspiration : A case report

Yuki Obara¹⁾, Miho Hagioita¹⁾, Ayako Jumonji¹⁾, Michihiro Shimizu¹⁾,
Koji Yoshida¹⁾, Shunichi Sasou²⁾, Satoshi Kasugai³⁾

1) Department of Pathology and Laboratory Medicine,

2) Department of Pathology,

3) Department of Gastroenterology, Hachinohe Red Cross Hospital

Key words : *Chordoma, Transrectal endoscopic
ultrasound-guided fine-needle aspiration (Transrectal EUS-FNA) , Cytology*

論文要旨

脊索腫は脊索組織への分化を示す稀な悪性腫瘍であるが、超音波内視鏡下穿刺吸引法 (endoscopic ultrasound-guided fine needle aspiration, 以下 EUS-FNA) で診断し得た報告例はきわめて少ない。今回我々は経直腸 EUS-FNA により診断し得た脊索腫の 1 例を経験した。

症例は 67 歳、男性。直腸後壁の粘膜下腫瘍を近医で指摘された。造影 CT 検査で直腸後壁に仙骨の骨破壊を伴う 10 cm 大の腫瘍性病変を認め、経直腸 EUS-FNA を施行した。穿刺吸引材料から細胞診標本とセルブロック標本を作製した。細胞診標本では粘液様物質を背景に、

豊富な細胞質を有する腫瘍細胞が集簇性および散在性にみられた。腫瘍細胞の細胞質は多空胞状を示し、脊索腫に特徴的な、いわゆる担空胞細胞であった。セルブロック標本でも粘液様物質と多空胞状細胞質を有する担空胞細胞の細胞塊を認めた。腫瘍細胞は免疫組織化学染色で AE1/AE3 (+), EMA (+), S-100 (+), Vimentin (+) を示し、脊索腫と診断した。仙骨部に発生し、直腸と近接した脊索腫の診断に、経直腸 EUS-FNA は有用であった。

I. 緒 言

脊索腫は脊索組織への分化を示す悪性腫瘍であり、仙尾椎や頭蓋底に好発し、その細胞像は広く認知されている。しかし、超音波内視鏡下

穿刺吸引法 (endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration, 以下 EUS-FNA) で脊索腫と診断し得た報告例はきわめて少ない。今回我々は経直腸 EUS-FNA により診断し得た脊索腫の 1 例を経験した。

Ⅱ. 症 例

症 例：67 歳, 男性

既往歴：2004 年, 痔手術

現病歴：2018 年 10 月, 肛門部付近の痛みを訴え, 近医を受診し, 直腸後壁に巨大な粘膜下腫瘍を指摘され, 精査のため当院消化器内科に紹介された。同年 12 月, 造影 CT 検査で直腸後壁に仙骨の骨破壊を伴う 10 cm 大の腫瘍性病変を認めた (写真 1)。下部消化管内視鏡検査が施行され, 直腸に隆起性病変を認めた。注腸造影検査で, 直腸は背側より圧排されており, 腫瘍による壁外圧排が疑われた。直腸背側の腫瘍の精査のため, 背側からの経皮的生検も考慮されたが, 直腸から腫瘍への到達距離のほうが背側から腫瘍へのそれより短いため, 経直腸 EUS-FNA を施行した。

超音波内視鏡検査所見：直腸 Rb の壁外圧排部位を超音波内視鏡で描出すると, 直腸外膜外に 75 mm × 89 mm 大の腫瘍を認めた。腫瘍内部は高エコー部と低エコー部が混在していた (写真 2)。

EUS-FNA：腫瘍に対し, acquire 22G を用いた穿刺を 3 回施行した。穿刺吸引材料についてその場でフィルター標本を作製し, 病変組織が採取されていることを確認した。封入していないため, 強拡大での腫瘍細胞の詳細な観察は困難であったが, フィルター標本の細胞像からは脊索腫や軟骨肉腫を含めた骨腫瘍を第一に考えることを報告し, 穿刺を終了した。残りの検体で最終診断用に細胞診標本, セルブロック標本を作製した。

細胞診標本所見：フィルター標本では, ヘマトキシリンに淡染する多量の粘液様物質を背景に, 淡明で広い細胞質を有する腫瘍細胞が集簇性および散在性にみられた (写真 3a)。

最終報告用に作製した細胞診標本でもフィルター標本と同様, ヘマトキシリンに淡染する多量の粘液様物質を背景に, 淡明で広い細胞質を

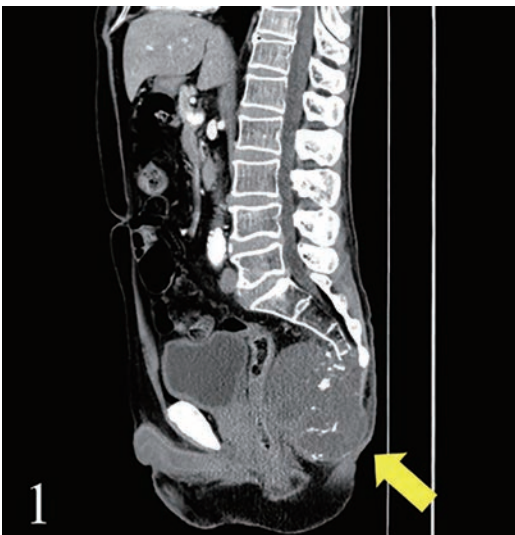


写真 1：造影 CT 所見。直腸後壁に仙骨の骨破壊を伴う 10 cm 大の腫瘍性病変を認める (矢印)。

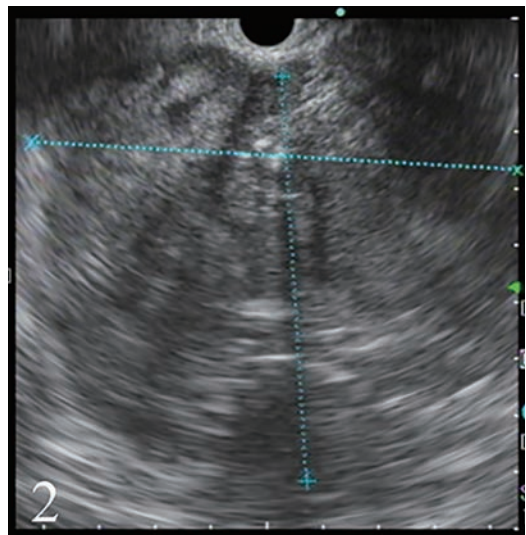


写真 2：超音波内視鏡検査所見。直腸外膜外に 75 mm × 89 mm 大の腫瘍を認める。腫瘍内部は高エコー部と低エコー部が混在している。

有する腫瘍細胞がみられた。この腫瘍細胞は大小の空胞を有していた。腫瘍細胞の核はやや小型で、クロマチンは細顆粒状に増量を示していた。小型核小体がみられた（写真3b）。PAS

反応で腫瘍細胞は陽性を示し（写真3c）、ギムザ染色で背景の粘液様物質はメタクロマジーを示した（写真3d）。以上の細胞所見から脊索腫と診断した。

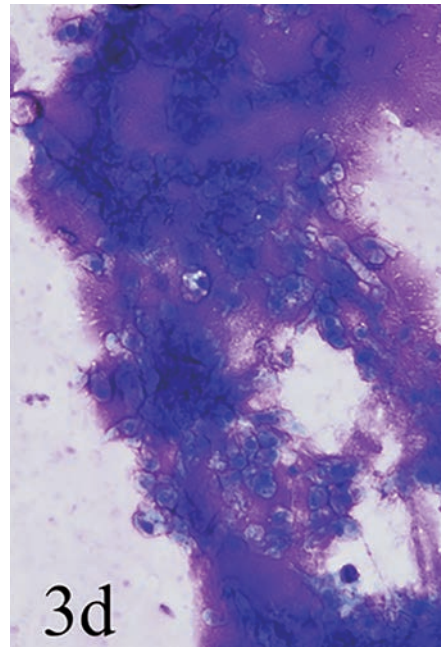
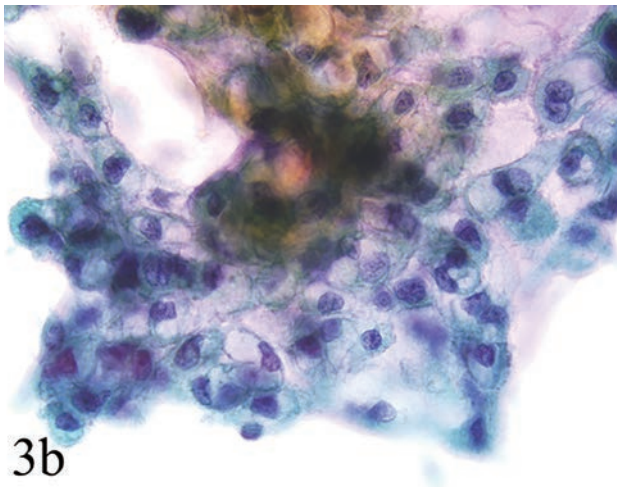
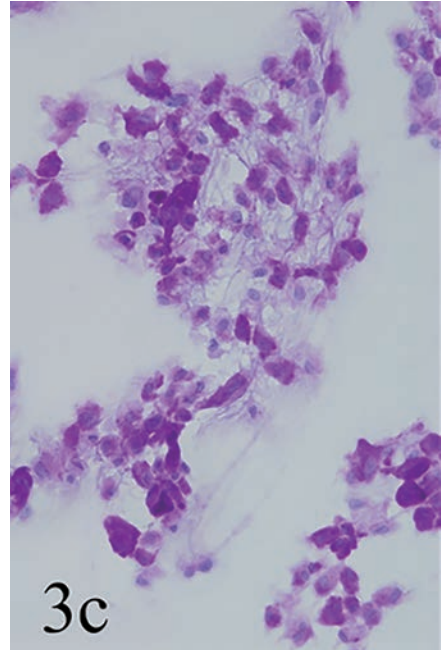
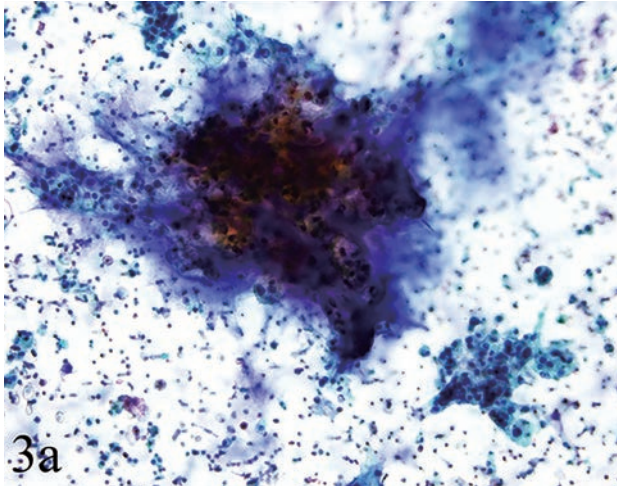


写真3 (a-d) 細胞診所見.

3a：ヘマトキシリンに淡染する多量の粘液様物質を背景に、腫瘍細胞が集簇性および散在性にみられる (Pap. 染色, $\times 20$)

3b：腫瘍細胞は多空胞状を示す淡明で広い細胞質を有している。いわゆる脊索腫の担空胞細胞である (Pap. 染色, $\times 100$)

3c：腫瘍細胞はPAS反応陽性である (PAS反応, $\times 40$)

3d：背景の粘液様物質はギムザ染色でメタクロマジーを示している (Giemsa 染色, $\times 40$)

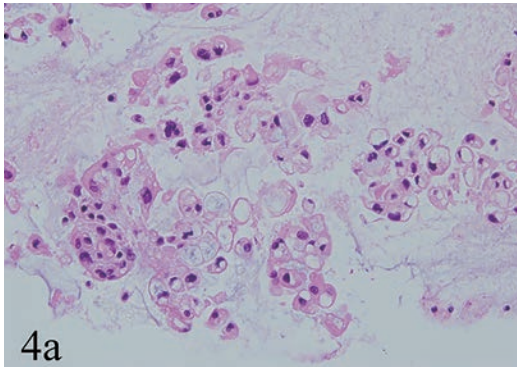
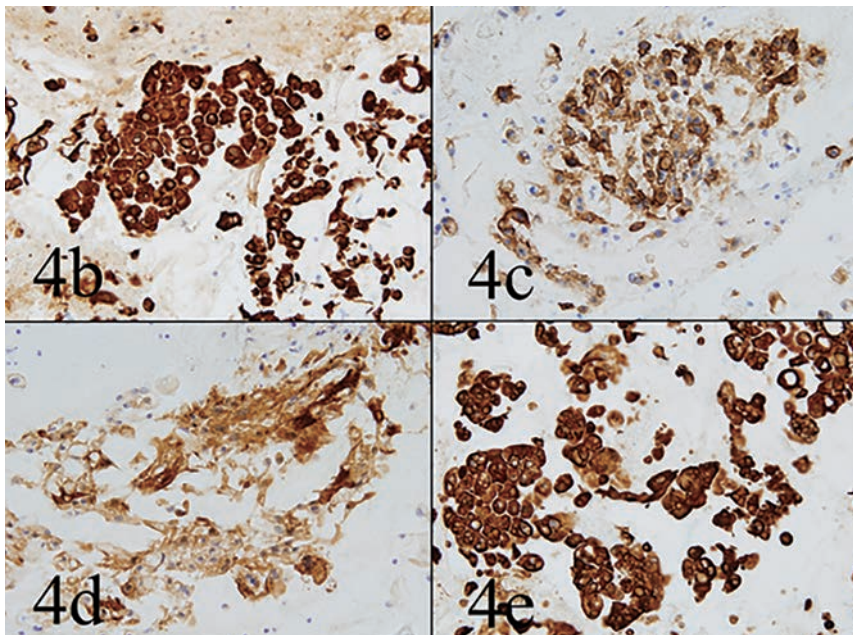


写真4 (a-e) : セルブロック標本.

4a: 粘液様のヘマトキシリンに淡染する無構造物質と多空胞状の細胞質を示す担空胞細胞の細胞塊がみられる (HE 染色, $\times 40$).

4 (b-e)

: 免疫組織化学染色で腫瘍細胞は AE1/AE3, EMA, S-100, Vimentin が陽性である (4b: AE1/AE3, 4c: EMA, 4d: S-100, 4e: Vimentin, $\times 40$).



セルブロック標本所見: セルブロック標本でも細胞診標本同様, 粘液様のヘマトキシリンに淡染する無構造物質と多空胞状細胞質を有する腫瘍細胞の細胞塊がみられた (写真4a). PAS 反応で腫瘍細胞は陽性を示し, ジアスターゼ消化試験で消化された. アルシアン青染色で粘液様物質は陽性を示した. 免疫組織化学染色で, 腫瘍細胞は AE1/AE3 と EMA, S-100, Vimentin のいずれもが陽性を示した (写真4 (b-e)). 以上から脊索腫と診断した.

患者は脊索腫の加療のため, 同年2月, 某医科大学へ転院した.

Ⅲ. 考 察

脊索腫は脊索組織への分化を示す悪性腫瘍である. 原発性悪性骨腫瘍の1~4%ほどを占め¹⁾, 年間約100万人に1人発症するとされる稀な骨腫瘍である²⁾. その44~57%が仙尾椎に, 4~27%が頭蓋底に発生するといわれ^{3,4)}, 仙尾椎発生例が約半数を占める. これまでの仙尾椎発生の脊索腫の報告では, 背側からの経皮的針生検や穿刺吸引細胞診により術前診断がなされた症例が多く^{5~7)}, EUS-FNAにより診断し得た報告例はきわめて少ない. EUS-FNAは腺腫瘍, 胃粘膜下腫瘍の診断に広く用いられてい

る手技であるが、近年では大腸の粘膜下腫瘍や大腸壁外の腫瘍の診断においてもその有用性が報告されている^{8,9)}。Gottlieb らは本症例のように経直腸 EUS-FNA により診断し得た脊索腫を報告している¹⁰⁾。本症例では、経直腸手技のほうが腫瘍への到達距離が短く、穿刺経路がより短いということから経直腸 EUS-FNA が選択され、正診を得ることができ、経直腸 EUS-FNA は有用であった。

当院では EUS-FNA に細胞検査士が立ち会い、現場で内視鏡医と患者情報の共有をしたうえで、標本作製、鏡検を行い、病変組織が採取されているかどうかを判断する on-site cytology を行っている。本症例では現場で作製したフィルター標本で、ヘマトキシリンに淡染する粘液様物質と広い細胞質を有する腫瘍細胞がみられ、脊索腫を含めた骨腫瘍を考えるとその場で内視鏡医に報告できた。EUS-FNA の on-site cytology では、標本作製や鏡検に時間的制約があり、より一層、穿刺部位や腫瘍の大きさ、既往歴などの患者情報が重要となる。鏡検前に内視鏡医と患者情報の共有を行うことは、本症例のような希少例の可能性も念頭に置き、鏡検に臨むことが出来るため、非常に重要であると考えられた。最終診断用に作製した細胞診標本を強拡大で鏡検すると、腫瘍細胞は大小の空胞を有しており、

脊索腫に特徴的な、いわゆる担空胞細胞であり、脊索腫と診断できた。脊索腫と鑑別を要する骨腫瘍として、背景に粘液様物質を認める場合がある軟骨肉腫が挙げられる。平沢ら¹¹⁾は脊索腫に特徴的な担空胞細胞の同定を行うことが出来れば、両者の鑑別は容易であると述べており、本症例でも、担空胞細胞の存在が両者の鑑別点になった。残検体で作製したセルブロック標本で免疫組織化学染色を行ったが、腫瘍細胞は AE1/AE3 と EMA, S-100, Vimentin 全て陽性を示し、上皮性マーカーが陰性を示す軟骨肉腫^{11,12)}とは免疫組織化学的にも鑑別可能であった。EUS-FNA で得られる検体は微小材料であることが多いが、セルブロック標本作製することにより、免疫組織化学染色の追加検索が可能になり、限られた検体量を有効に活用出来た。

IV. 結 語

本症例は仙骨部発生の脊索腫であり、その診断に経直腸 EUS-FNA が有用であった。EUS-FNA の on-site cytology において、内視鏡医と患者情報の共有を行うことで本症例のような希少例も鑑別に挙げ、鏡検に臨むことが出来た。EUS-FNA の残検体でセルブロック標本作製することにより、免疫組織化学染色の追加検索が可能になり、限られた検体量を有効に活用出来た。

文 献

- 1) 日本整形外科学会・日本病理学会編, 整形外科・病理 悪性骨腫瘍取扱い規約 第4版, 金原出版, 東京, 2015
- 2) Chambers KJ, Lin DT, Meier J, et al.: Incidence and survival patterns of cranial chordoma in the United States. *Laryngoscope* 2014; 124: 1097-1102.
- 3) Eriksson B, Gunterberg B, Kindblom LG: Chordoma. A clinicopathologic and prognostic study of a Swedish national series. *Acta Orthop Scand* 1981; 52 (1) : 49-58.
- 4) Ferraresi V, Nuzzo C, Zoccali C, et al.: Chordoma: clinical characteristics, management and prognosis of a case series of 25 patients. *BMC Cancer* 2010; 10:22
- 5) 入江康司, 入江砂代, 杉島節夫, ほか: 針生検吸引細胞診で確診し得た尾仙骨部脊索腫の1例. *日臨細胞誌* 1985; 24 (4) : 754-759.
- 6) 深津孝英, 梅田佳樹, 田島和洋, ほか: 尿閉を主訴とした仙骨脊索腫の1例. *泌尿紀要* 1999; 45: 855-857.
- 7) 中山祐次郎, 松本寛, 河村英恭, ほか: 脊索腫に対する重粒子線治療前に腹腔鏡下スコープ挿入術を行った1例. *日医大医会誌* 2016; 12 (1) :26-29.
- 8) Sasaki Y, Niwa Y, Hirooka Y, et al.: The use of endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration for investigation of submucosal and extrinsic masses of the colon and rectum. *Endoscopy* 2005; 37 (2) : 154-160.
- 9) Soh JS, Lee H, Lee S, et al.: The clinical usefulness of endoscopic ultrasound-guided fine needle aspiration and biopsy for rectal and perirectal lesions. *Intest Res.* 2015; 13 (2) :135-144.
- 10) Gottlieb K, Lin PH, Liu DM, et al.: Transrectal EUS-guided FNA biopsy of a presacral chordoma-report of a case and review of the literature. *World J Gastroenterol* 2008; 14 (16) :2586-2589.
- 11) 平沢浩, 須藤健助, 伊藤裕子, ほか: 脊索腫2例の細胞像. *日臨細胞誌* 1995; 34 (4) :716-721.
- 12) 佐藤信也, 鍋島一樹, 佐藤勇一郎, ほか: 頭蓋内に発生した軟骨肉腫の1例. *日臨細胞誌* 2001;40 (2) :139-143.