

一症例一

十二指腸細網細胞肉腫について

泉大津市立病院外科

青木洋三 谷口勝俊
栗本博史 岡村光雄

RETICULUM CELL SARCOMA OF THE DUODENUM

Yozo AOKI, Katsutoshi TANIGUCHI, Hirofumi KURIMOTO and
Teruo OKAMURA

Department of Surgery, Izumiotsu City Hospital

緒言

小腸に発生する悪性腫瘍は比較的稀である。小腸肉腫についてその発生を部位別に見ると、十二指腸に最も少なく、回腸末端に近づくにつれその発生頻度は次第に増加する。細網細胞肉腫に関しても同様の傾向があり、十二指腸に発生することは極めて稀で、本邦報告例はわれわれの経験した症例を含めてわずか9例を数えるにすぎない。本論文では、われわれが最近経験した十二指腸細網細胞肉腫の1例を紹介するとともに、自験例を含む本邦報告例9例を要約し、合せて若干の文献的考察を行いたい。

症例

患者：48才，女性，保険外交員。

主訴：心窩部痛と胃部膨満感。

既往歴：昭和34年虫垂切除。

家族歴：特記すべき事なし。

現病歴：昭和48年5月頃より時々心窩部痛および胃部膨満感あり，A医を受診し胃部透視の結果十二指腸球部の変形を指摘され，十二指腸潰瘍としての治療を受けていた。その後も空腹時の心窩部痛があり，9月B医受診，胃十二指腸レ線検査で十二指腸球部の陰影欠損を指摘され，10月8日当科に紹介された。

10月9日当科にて十二指腸ファイバースコープおよび生検施行。

10月11日当科に入院す。

入院時所見：体格中等度にして栄養良好。脈搏72/分，整，緊張良。眼瞼結膜に貧血なく眼球結膜に黄疸なし。舌は清，湿潤。頸部リンパ節およびウイルスヒョウ腺触れず。胸部著変なし。トラウベ氏半月腔明瞭。肺肝境界第6肋間。腹部平坦，軟。回盲部に1期癒合を思わせる小手術痕あり。肝，腎，脾触れず。心窩部よりやや右寄

りに軽度の圧痛を有する抵抗を触れる。グル音正常。膝蓋腱反射正常，左右差なし，病的反射認めず。肛門指診異常なし。血圧116~70mmHg。

検査所見：そのあらましを表1に示す。胃十二指腸透視では胃部に異常なく，十二指腸球部大弯側に矢印に示す如き filling defect を認め(図1)，hypotonic duodenography でも同様の所見が得られた(図2)。図3は十二指腸ファイバースコープの所見で，bulbusの大弯側や前壁によつて周辺粘膜と同様の色調を有する粘膜に被覆された隆起を認め，表面に数個の小陥凹が見られた。同時に採取せる5つの組織片からは悪性像なく，これら標本の中に腫瘍そのものが含まれていたかどうか疑問視された。

表1 検査成績

血液検査：RBC・ $393 \times 10^4 / \text{mm}^3$ ，WBC・ $6900 / \text{mm}^3$ ，Hb・84%，Ht・39%，T.P.・7.0 g/dl，A/G・1.9，
血清電解質 (mEq/l)：
Na・141，K・4.3，Cl・107，Ca・3.9，
尿：異常なし
腎機能：異常なし
肝機能：I.I.・4，Co-R・2(3)，Alk-P・10 K-A u.，GOT・18，GPT・6
血沈：1時間平均12mm
胃液：正酸
十二指腸液：色調及びI.I.・正常
細胞診・malignant cell. (—)
糞便：潜血・(—)，虫卵・(—)
心電図：異常なし

以上より十二指腸球部に発生した粘膜下腫瘍と診断し，10月24日手術を施行した。

手術所見：約15cm長の上腹部正中切開にて開腹。皮下

図1 胃十二指腸透視 矢印部に filling defect を認める。

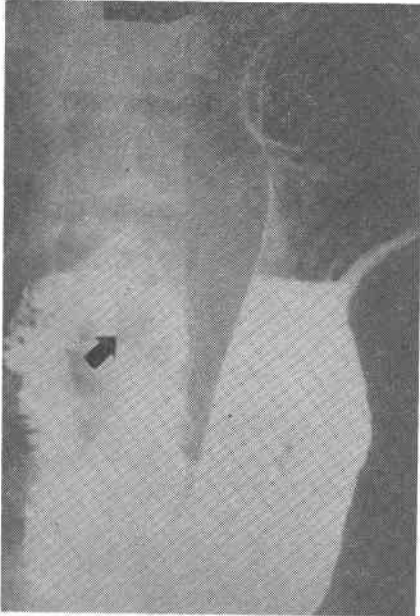
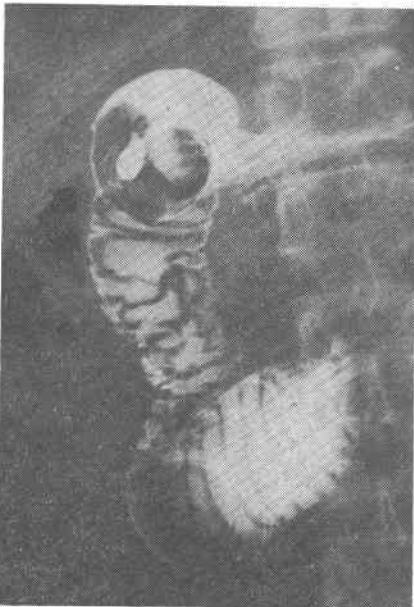
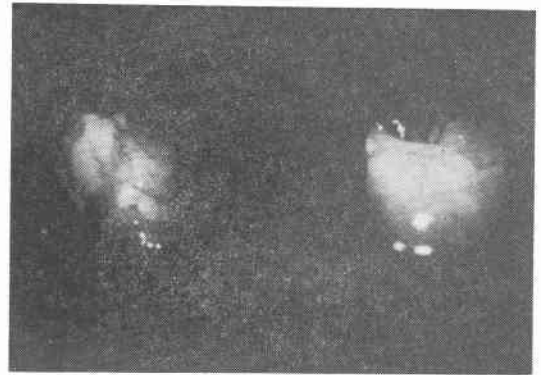


図2 低緊張性十二指腸造影 矢印部に filling defect を認める。



脂肪組織の発育は良好で、腹腔内には腹水なし。肝、胆嚢、総胆管、膵、脾に著変なく、胃十二指腸を検するに、胃幽門輪のすぐ肛側の大弯側に、クルミ大、弾性硬の腫瘤を触知し、大網の幽門部には豌豆大に腫大したリンパ節を数個認めたが、腫瘤部に相当する漿膜面は一見

図3 内視鏡所見



したところ正常であつた。腫瘤の存在する十二指腸球部を含めて胃を約 $\frac{1}{2}$ 切除し、Billroth II法にて再建した。

術後経過：経過は良好で術後44日目に退院した。12ヵ月後の現在、愁訴もなく術前の健康時の仕事に従事している。

摘出標本：図4は切除胃を小弯に沿つて切開したもので、十二指腸球部大弯側に3.5×3.0×1.3cmの腫瘤が存在した。境界は明瞭で被覆粘膜は所々で小さな発赤、びらんを示す以外、周辺粘膜と余り変らなかつた。剖面は膨隆部に一致して粘膜と筋層間に限局性の帯赤白色、比較的均一な腫瘤を認め、幽門輪を越えての胃への浸潤は見られなかつた。

組織学的所見：粘膜固有層は腫瘍細胞の浸潤のため全体として肥厚し、粘膜筋板は不明瞭となり、粘膜下層より筋層にかけて腫瘍細胞の浸潤性のいちじるしい増殖があり、筋層の上層も一部侵蝕されている。腫瘍細胞はリンパ球よりやや大きく不整な核を有し、胞体淡明で、一部では互に原形質突起で連絡する像が見られ(図5)、これを鍍銀法によつて検すると、腫瘍細胞は強く発達した格子状線維網の中につつまれているのが明瞭となつた

図4 摘出標本

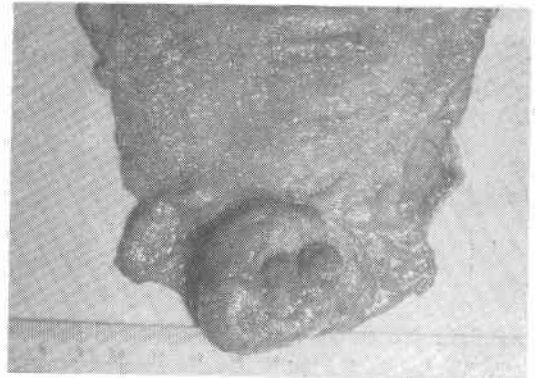


図5 病理組織像 ヘマトキシリン・
エオジン染色 200倍

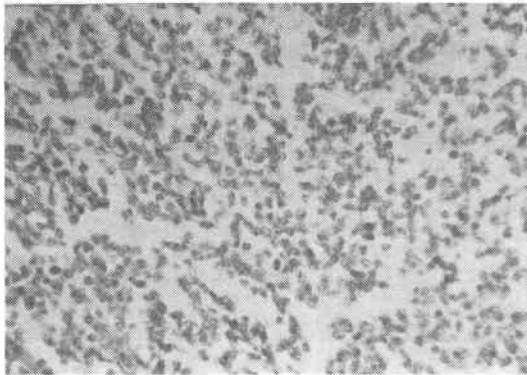


図6 病理組織像 ヘマトキシリン核染色
の後、鍍銀染色 200倍

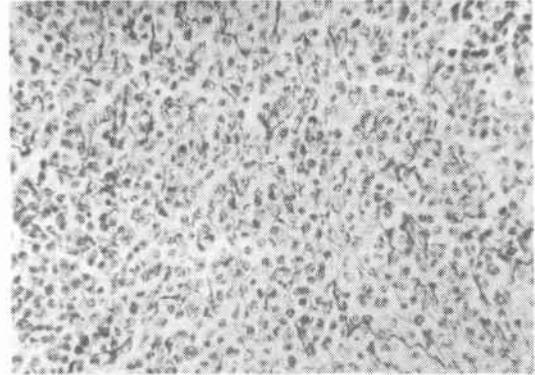


表2 小腸悪性腫瘍のうち十二指腸悪性腫瘍及び十二指腸リンパ肉腫の占める割合

著者	小腸悪性腫瘍	十二指腸悪性腫瘍		十二指腸リンパ肉腫	
		症例	%	症例	%
Eger, S.A. (1933) ⁴⁾	228	104	45.6	0	0
Darling, R.C. et al. (1957) ⁵⁾	115	14	12.2	0	0
Good, C.A. (1963) ²⁾	331	56	16.9	1	0.30
Pagtalunan, R.J.G. et al. (1964) ⁶⁾	327	61	18.7	1	0.31
Ostermiller, W. et al. (1966) ⁷⁾	122	36	29.5		
Middleton, W.R.G. (1967) ³⁾	42	17	40.5	0	0
Chavez, C.M. et al. (1970) ⁸⁾	40	10	25.0	0	0
Hancock, R.J. (1970) ⁹⁾	102	19	18.6	1	0.98
計	1307	317	24.3	3	0.23

(図6).

断端および大網の幽門部リンパ節には悪性像は認められなかつた。

以上の所見より、われわれはこれを十二指腸球部に原発した細網細胞肉腫と診断した。

考 按

剖検で小腸悪性腫瘍が発見される頻度は0.14%といわれ¹⁾、これは全消化管腫瘍の1.7~3%にあたる²⁾³⁾。これらの数字から考えると、小腸に発生する悪性腫瘍は比較的稀なものであるといえる。表2の如く著者らが集計し得た小腸悪性腫瘍は1307例で^{2)~9)}この内十二指腸悪性腫瘍は317例、24.3%であり、しかもこの大部分は十二指腸癌で、Jefferson¹⁰⁾の“Considering the shortness of the duodenum, it is evident that inch for inch it is more liable to cancer than the rest of the small intestine.”は正に至言といえる。したがって十二指腸に発生するリンパ肉腫は小腸悪性腫瘍1307例中3例、0.23%で極めて稀なものといえる。このリンパ肉腫の分類に関し

表3 Classification of Lymphosarcoma

1. True malignant lymphocytoma. (small round-cell lymphosarcoma)
2. Lymphosarcoma made up largely of reticular cells. (large-cell lymphosarcoma, a reticulum cell sarcoma)
3. Tumor of endothelial cells of lymphoid origin. (endothelioma)

Machella¹¹⁾は表3の如く3つのtypeに分けてはいるものの、これらを組織学的に分類することは困難なことが多く、tuberculous lymphoma, lymphatic leukemia, Hodgkin's disease, myeloid leukemia, endothelial hyperplasia of tuberculous origin を除外し得た時、一括して“lymphosarcoma”と呼んでよいとも述べている。それ故表2の中で3例のリンパ肉腫があるがこの内何例が厳密な意味での細網細胞肉腫に相当するのかわからず、Machella自身も彼の著書で3つのtypeを合せて15例を集計しているので実際の細網細胞肉腫症例は15例より少

数であろうと考えられる。

細網細胞肉腫が十二指腸に発生することが稀であることは、発生母地の関係上、小腸では lymphoid tissue の多数存在する distal ileum の方が好発することからも説明される⁹⁾。肉眼的な発育形式としては、潰瘍型、ポリープ型、輪状狭窄型、びまん性浸潤型に4分されるが¹²⁾、細網細胞肉腫組織は線維構造に乏しく、また、粘膜下層への浸潤による神経叢の破壊、筋層への浸潤により、内圧の亢進によつて容易に拡張しやすい性質を有している¹¹⁾¹³⁾。この状態をレ線的に見ると、蠕動を欠如する dilated atonic segment として現われ“aneurysmal dilatation”と表現する¹⁾。臨床症状は十二指腸に発生する癌やその他の肉腫と余り変るところがない。Joergenson ら¹⁴⁾は39例の十二指腸悪性腫瘍について発生部位別に出現する症状の頻度を記載しているが periampullary のものに黄疸が高頻度に見られる以外は大体部位に関係なく同様の傾向があり、体重減少、嘔吐、腹痛、糞便潜血反応陽性などを挙げている。しかし、Bosse ら¹⁵⁾が microcytic hypochromic anemia が最もよく見られる徴候であると記載しているのも注目値する。最近では補助診断法の1つとして十二指腸ファイバースコープおよびこれと同時に生検が重要視される様になつてきた。胃十二指腸透視も欠かすことのできない診断法で、Taenzer ら¹⁶⁾はその所見の主なもの、① ポリープ様陰影欠損、② 十二指腸壁の肥厚と柔軟性の欠如、③ 潰瘍形成、④ 狭窄であると述べており、Anderson ら¹⁷⁾は十二指腸の中部および下1/3に発生した腫瘍は、造影剤がこの部で急速に通過すること、また、この部は胃によりかく

れる可能性があるためルーチーンの G.I. series では見過ごされることがあり、したがつてなだけ少量でしかも濃厚なバリウムを用いることを推奨している。

Hypotonic duodenography は病変をより正確に描出するが、本法にあつては特に C-loop が拡張し、これによつて壁内の異常および外部からの病変はよく観察される反面、ルーチーンの検査では気付かない微小な変化も見出され、これが誤診の原因ともなる。この現象を Kikkawa ら¹⁸⁾は“pseudotumor effect”と称し、hypotonic duodenography とルーチーンの G.I. series との well balanced evaluation の必要性を強調している。

これらの他、場合によつては十二指腸液細胞診や選択的血管造影も診断の一助となるが、十二指腸液細胞診を行う際は二重ゾンデを用い胃液の流入を防ぎながら行うと有所見率が高まるといわれている。しかし肉腫では中心壊死が起ることにより初めて陽性に出るので、早期診断には全く役立たない¹⁹⁾。

本邦における十二指腸細網細胞肉腫症例は、表4に掲げたように自験例を含めて現在までに9例である^{20)~27)}。年齢別に見ると30才から77才までに分布し平均年齢49.7才で、癌患者と異なり、30才台4名、40才台1名、50才台1名、60才台2名、70才台1名と、若年者にピークを有することは海外の文献とよく一致するところである。男女差は6:3で男性に好発している。主訴を見ると当然のことながらその大部分は消化器症状で、とりわけ腹痛が約半数を占める。糞便潜血反応は1例を除いてすべて陽性であり、Hunt ら²⁸⁾が指摘しているように、糞便潜血反応が陽性で不明の貧血がある患者に直面した場合

表4 本邦に於ける十二指腸細網細胞肉腫症例

報告者	症例		主訴	レ線所見	糞便潜血	術前診断	手術時移の有無	手術術式	その他
	年齢	性							
朝倉 善男 ²⁰⁾ (1957)	30	♂	上腹部緊張感 嘔吐	球部不明瞭 下行部陰影欠損	(卅)		(+)	空腸切除・端々吻合 胃空腸吻合	術後282日目に死亡
方波見猛・他 ²¹⁾ (1959)	53	♂				肝癌又は胆嚢癌	(+)		剖検 転移(+)は剖検時のもの
河村 基・他 ²²⁾ (1965)	36	♂	心窩部痛 食欲不振	総胆管陰影欠損 十二指腸通過障害		胆嚢症	(+)	Child 氏手術	
加藤陽一郎・他 ²³⁾ (1971)	37	♀	腹痛 下肢倦怠感	下水部部の腫瘍	(卅)	粘膜下腫瘍	(+)	胃切除(B・II) ブラウン吻合	術後11日目より黄疸出現し死亡
瀬藤晃一・他 ²⁴⁾ (1972)	77	♂	下血	球部の変形とニョ ジェ	(卅)	良性潰瘍	(+)	胃切除(B・II)	術後74日目死亡
吉田良行・他 ²⁵⁾ (1972)	61	♂					(+)	十二指腸空腸切除 端々吻合	術後35日健在
桃野 哲・他 ²⁶⁾ (1973)	66	♂	心窩部痛 おくび	幽門輪と球部の変 形と潰瘍形成	(+)		(+)	胃十二指腸切除 (B・II)	術後3ヵ月健在
田中一雄・他 ²⁷⁾ (1973)	39	♀	右悸肋部痛	上・下行・下部に 正常粘膜像なし	(卅)	肉腫	(+)	胃十二指腸 臍頭部切除	術後5ヵ月半浸潤部 腸管穿孔にて死亡
著者 (1974)	48	♀	心窩部痛 胃部膨満感	球部大弯側の陰影 欠損	(-)	粘膜下腫瘍	(-)	胃十二指腸切除 (B・II)	術後12ヵ月健在

には *small bowel conscious* にならなければならないと痛感させられる。十二指腸レ線所見としては、陰影欠損、変形、潰瘍形成、通過障害、造影不明瞭と種々の所見が観察されている。術前診断は、粘膜下腫瘍2例、肉腫1例、潰瘍1例、その他で、発生頻度が極めて低いことと関連して、術後組織診断と一致したものは1例も見当らない。今後、内視鏡ならびに *biopsy* の技術的向上と相俟つてその質的診断も可能となるであろう。手術時の所見で特徴的なことは、著者らが経験した症例を除き、すでに周囲臓器およびリンパ節に程度の差はあれ浸潤、転移を認めていることで、早期発見、早期治療の困難性を物語っている。その結果、遠隔成績も悪く、5年生存はもとより1年生存例すらなく、そういう意味からもわれわれの症例を興味深く *follow up* して行きたいと思つている。

自験例が球部に発生していたことと関連して、最後に球部腫瘍について述べる。通常ここに発生するのは、ポリープその他良性腫瘍が主であり、悪性腫瘍は稀である¹⁷⁾。Stassaら²⁹⁾は17例の球部腫瘍の内14例が良性、3例が悪性であったといひ、3例の悪性腫瘍の内訳は、リンパ肉腫1例、カルチノイド2例であつたと記載している。彼らはこの論文中で、球部で管内性に発育する腫瘍は常に良性で高い正診率があると述べているが、われわれの症例が隆起性病変でしかも悪性であつたことと考え合せ、注意の要がある。

鑑別すべきものに、十二指腸に発生する他の良性、悪性腫瘍の他、膵癌、他臓器からの十二指腸周囲リンパ節転移による圧迫、良性潰瘍、胃粘膜脱、胃ポリープの嵌入、憩室、輪状疝などがある¹⁵⁾³⁰⁾。

治療法は、まず第1に外科的療法であり、術後に種々の抗癌剤が用いられている。

結 語

十二指腸細網細胞肉腫について9例の本邦報告例を分析するとともに、本疾患の症状、診断、治療について、若干の文献的考察を加えて報告した。

なお、本論文の要旨は第115回近畿外科学会に於て発表した。

ご校閲を賜つた和歌山県立医科大学消化器外科教室 勝見正治教授に深謝する。

文 献

- 1) McPeak, C.J.: Malignant Tumors of the Small Intestine. *Am. J. Surg.*, 114: 402—411, 1967.
- 2) Good, C.A.: Tumors of the Small Intestine. *Am. J. Roentgenol.*, 89: 685—705, 1963.
- 3) Middleton, W.R.J.: Small Bowel Tumors. *Aust. Ann. Med.*, 16: 155—160, 1967.
- 4) Eger, S.A.: Primary Malignant Disease of the Duodenum. *A.M.A. Arch. Surg.*, 27: 1087—1108, 1933.
- 5) Darling, R.C., et al.: Tumors of the Small Intestine. *New Eng. J. Med.*, 260: 397—408, 1957.
- 6) Pagtalunan, R.J.G., et al.: Primary Malignant Tumors of the Small Intestine. *Am. J. Surg.*, 108: 13—18, 1964.
- 7) Ostermiller, W., et al.: A Clinical Review of Tumors of the Small Bowel. *Am. J. Surg.*, 111: 403—409, 1966.
- 8) Chavez, C.M., et al.: Primary Tumors of the Duodenum. *South. Med. J.*, 63: 1001—1004, 1970.
- 9) Hancock, R.J.: An 11-year review of primary tumours of the small bowel including the duodenum. *Can. Med. Assoc. J.*, 103: 1177—1179, 1970.
- 10) Jefferson, G.: Carcinoma of the Suprapapillary Duodenum Causally Associated with Pre-existing Simple Ulcer. *Brit. J. Surg.*, 4: 209—226, 1916.
- 11) Machella, T.E.: Tumors of the Small Intestine. Bockus, H.L.: *Gastroenterology*. Vol. 2. 176—204, W.B. Saunders, Philadelphia & London. 1964.
- 12) Baggenstoss, A.H.: Primary malignant neoplasms of the duodenum excluding the papilla of Vater: A clinicopathologic study of 31 cases. *Gastroenterology*, 30: 421—430, 1956.
- 13) Copeland, M.M., et al.: Lymphosarcoma of the Duodenum: Report of a Case; Review of the Literature. *A.M.A. Arch. Surg.*, 58: 511—528, 1949.
- 14) Joergenson, E.J., et al.: A Clinical Study of Fifty-Six Duodenal Tumors. *West. J. Surg. Obstet. Gynec.*, 61: 507—518, 1953.
- 15) Bosse, G., et al.: Roentgenologic Findings in Primary Malignant Tumors of the Duodenum: Report of 27 Cases. *Am. J. Roentgenol.*, 107: 111—118, 1969.
- 16) Taenzer, V., et al.: Der Duodenaltumor als kausalgenetisches und diagnostisches Problem. *Dtsch. Med. Wschr.*, 97: 1413—1415, 1972.
- 17) Anderson, A., et al.: Primary Tumors of the Duodenum. *Acta Chir. Scandinav. Suppl.*, 343: 28—36, 1965.
- 18) Kikkawa, K., et al.: "Pseudotumor Effect" in Hypotonic Duodenography: Report of 2 Cases. *Radiology*, 102: 527—530, 1972.
- 19) 佐藤寿雄ほか：十二指腸悪性腫瘍について、外科, 32: 281—287, 1970.
- 20) 朝倉善男：十二指腸空腸細網肉腫の1例、臨消,

- 5: 107—110, 1956.
- 21) 方波見猛ほか：十二指腸肉腫の1例, 癌の臨床, 5: 759—763, 1959.
- 22) 河村 基ほか：十二指腸細網肉腫の一例, 日消誌, 62: 342—343, 1965.
- 23) 加藤陽一郎ほか：十二指腸細網肉腫の1例, 日消誌, 68: 243—244, 1971.
- 24) 瀬藤晃一ほか：十二指腸細網肉腫の1例, 日消外会誌, 5: 289—290, 1972.
- 25) 吉田良行ほか：上腸間膜動脈再建術によって切除出来た巨大十二指腸細網細胞肉腫の1治験例, 日外会誌, 73: 845, 1972.
- 26) 桃野 哲ほか：十二指腸細網肉腫の1例, 日癌治療会誌, 8: 105, 1973.
- 27) 田中一雄ほか：十二指腸細網肉腫の1例, 胃と腸, 8: 1648—1653, 1973.
- 28) Hunt, W.H., et al.: Primary Neoplasms of the Small Bowel: A Report of 81 Cases. South. Med. J., 51: 482—488, 1958.
- 29) Stassa, G., et al.: Primary Tumor of the Duodenal Bulb. Am. J. Roentgenol., 107: 105—110, 1969.
- 30) Taubert, W., et al.: Zur Differentialdiagnose von Kontrastmittelaussparungen im Bulbus duodeni. Deutsch. Gesundh., 24: 1604—1610, 1969.