

症 例

巨大な食道平滑筋腫の1治験例

神戸大学第1外科

今中 洋子 堀 公行 柏原 博
高瀬 信明 佐藤 美晴 広本 秀治
斎藤 洋一

神戸大学中検病理

岡 田 聡

A CASE OF A GIANT ESOPHAGEAL LEIOMYOMA

Yoko IMANAKA, Kimiyuki HORI, Hiroshi KASHIWABARA, Nobuaki TAKASE,
Yoshiharu SATO, Hideharu HIROMOTO and Yoichi SATO

1st Department of Surgery, Kobe University, School of Medicine

Satoshi OKADA

Division of Pathology, Central Clinical Laboratory, Kobe University, School of Medicine

索引用語：食道腫瘍，食道平滑筋腫

I. はじめに

食道平滑筋腫の報告は、近年次第に増加してはいるが、癌腫にくらべるとまれな疾患である。

今回著者らは、下部食道より発生した巨大な食道平滑筋腫を経験し摘出治癒せしめたので、本邦例の集計を分析し考察を加えて報告する。

II. 症 例

患者：70歳男性，職業，茶華道教師

主訴：嚥下困難

既往歴：18歳肺結核，67歳高血圧を指摘され以後降圧剤を内服している。69歳で前立腺肥大症を指摘され，内服薬にて治療中であった。

家族歴：姉，肺結核

現病歴：昭和48年頃より時々嚥下困難を自覚していたが，昭和52年頃よりその症状は増強した。近医にて上部消化管透視を受け，食道の圧排を指摘されたが，治療は受けず放置していた。昭和54年胸部を打撲し胸部X線写真をとった際，異常陰影を指摘され，精査のため某病院に入院した。精査の結果，縦隔腫瘍の診断を受け，手術のため昭和55年3月19日当科へ入院した。

現症：身長 145cm，体重 39kg，脈拍82/分で整。血圧

136/94mmHg，眼瞼結膜はやや貧血様，眼球結膜には黄疸を認めず，胸部腹部打聴診で異常を認めなかった。

入院時検査所見：赤血球数 361×10^4 ，Hb 9.7g/dl，Ht 29.6%，白血球数5,000，血小板 19.9×10^4 ，血清総タンパク7.0g/dl，A/G 1.50，その他肝機能腎機能に異常を認めなかった。血清 K^+ が，2.7mEq/l と低値を示していたが，降圧利尿剤の影響と思われた。心電図では不完全右脚ブロックを示していた。肺機能検査では，一秒率54%，%肺活量85%と呼出障害を認めた。

胸部X線写真では，正面像で縦隔縁中央部より半球状に突出した境界鮮明な腫瘤様陰影を認め，側面像で腫瘤が後縦隔に位置していることがわかった（図1）。

食道透視では，正面像で中下部食道が，13cmにわたって左方へ圧排されていたが，食道粘膜のレリーフは正常であった。側面像は前医のレ線写でEiの部位に小さな瘻孔形成を認めたが，当科での術前レ線写ではこれが認められていない（図2）。

食道ファイバースコープでは，上門歯列より25cmから35cmにかけて食道前壁より腫瘤が内腔に突出し，表面は食道粘膜をかぶり，結節状に隆起していた。35cmの部位に食道粘膜の欠損部を認め黄白苔をかぶってい

図1 胸部X線写真
腫瘍は矢印に示された部に位置している。

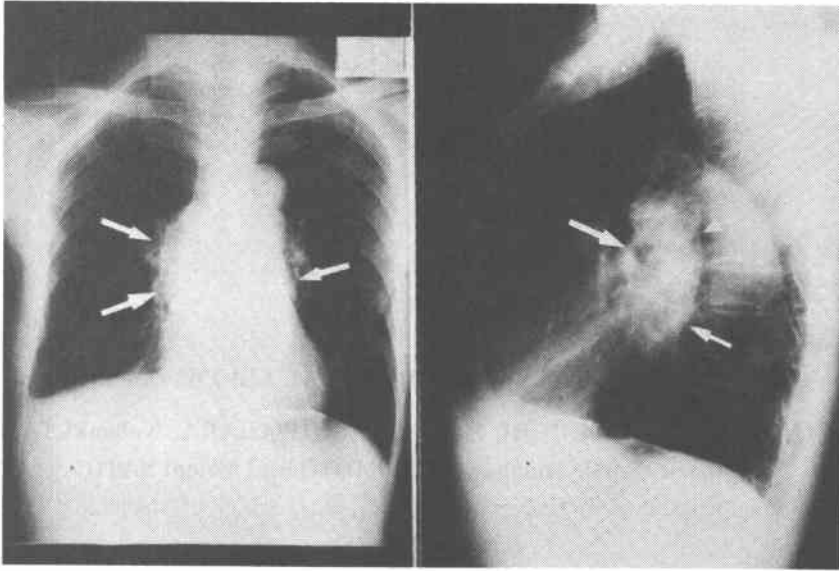
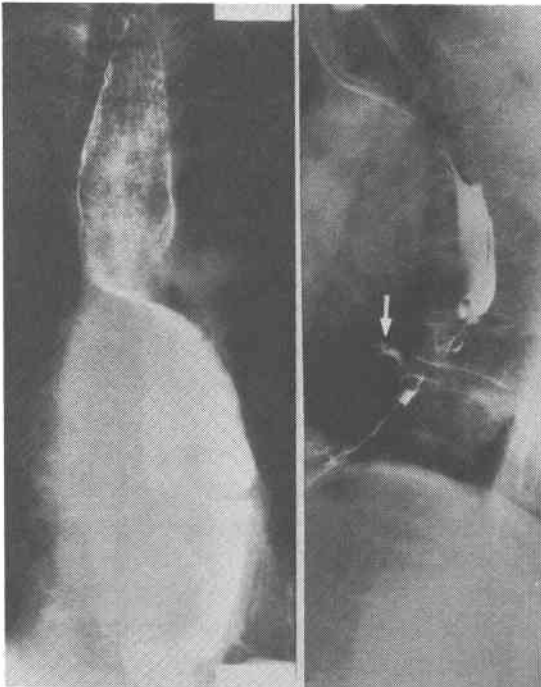


図2 食道透視所見

正面像で食道が左方へ著明に偏位している。前医の側面像では矢印の部に、瘻孔と思える突出像をみている。



た。この部位より生検を試みたが、食道粘膜上皮が採取されたのみで腫瘍組織は採取されなかった。

選択的動脈造影で腫瘍上部には気管支動脈の縦隔枝より栄養血管が出ていたが、encasementや新生血管の増生は軽度であった。腫瘍下部への左横隔膜下動脈からの栄養血管が見られた。奇静脈造影では、transverse portionに著明な圧排所見が得られ、また奇静脈本幹の造影が全く見られなかった。

手術時所見：右第5肋間にて開胸し、後縦隔へ入り、壁側胸膜をひらくと、心のう後方に手拳大の弾性硬、表面平滑、結節状の凹凸を有し、線維性被膜様のもので包まれた腫瘍を認めた。周囲臓器との癒着を認め核出は困難かと思われたが慎重に剝離を進めると、腫瘍に向かって周囲より血管が新生しているのが見られた。また奇静脈、大動脈、心外膜への腫瘍の浸潤はなく、周囲リンパ節の腫大も認めなかった。腫瘍を鈍的に摘出する際、食道に幅2cm長さ5cmの欠損が生じたため欠損部を2層に縫合して手術を終了した。なお術中の凍結迅速病理診断では平滑筋腫で悪性所見は認めない。

病理学的所見：摘出腫瘍は、 $12.5 \times 7.5 \text{cm} \times 5 \text{cm}$ 、重量255grで弾性硬、表面平滑であるが結節性の凹凸を認めた。断面は、充実性で均一な灰黄白色を呈し、境界は不明瞭ながら渦巻き状の線状構造が結節する傾向が窺われた。断面での被膜構造は不明瞭で、また出血巣や壊

図3 摘出標本

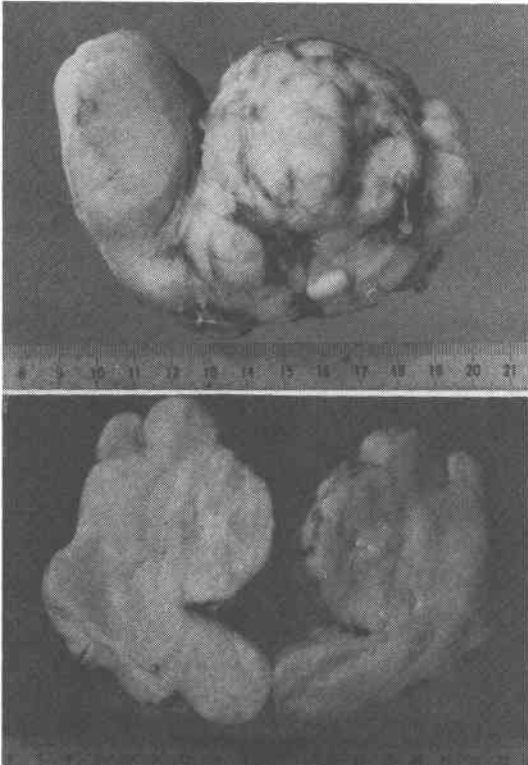
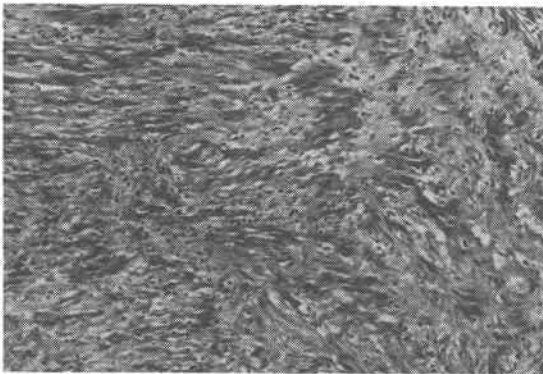


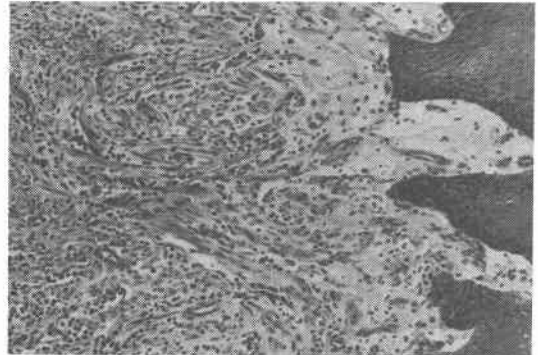
図4 腫瘍組織像 長紡錘形腫瘍細胞が束状配列を示して増生し、核の柵状配列が多い。染色、H-E × 100



死巣は認めなかった(図3)。

組織像では、長紡錘形の腫瘍細胞が束状配列を示して増生しており、核の柵状配列が多く出現していた(図4)。腫瘍の周辺部は偽性被膜が存在する部位や、食道内腔に突出した部位には潰瘍化が見られ、また食道粘膜

図5 食道粘膜で覆われた部位。被膜はなく、粘膜下まで腫瘍細胞が増生しているが、悪性異型は認めない。近位に潰瘍が存在するため炎症性細胞浸潤もみられる。H-E染色 × 100



で覆われた部位には、粘膜下まで腫瘍細胞が増生していた(図5)。これらの腫瘍細胞に細胞異型や核分裂像は認められず、病理組織学的には食道平滑筋腫と診断された。

術後経過：一過性に軽度の肝機能障害を認めた以外は順調に経過し、合併症なく術後46日目に退院した。

III. 考 察

食道に発生する良性腫瘍には、平滑筋腫、嚢腫、脂肪腫、線維腫、血管腫などがあるがこの中では平滑筋腫が最も多く、その60~80%を占めるとされている¹⁾²⁾。

本邦における食道平滑筋腫の手術報告例は思田ら³⁾が、1975年末までに147例を集計報告している。それに加え著者らは、それ以降1979年7月までの手術報告70例を集計し得た。この集計し得た症例に思田らの報告した147例をあわせると、本邦報告例は217例に達した。今回はこれらの集計症例をもとに判明し得た各項目について分析を行った。

まず本邦例の発生年齢をみると(表1)、40歳代が

表1 食道平滑筋腫の年齢別構成(174例について)

(年齢)	本邦例 (%)	Storey & Adams (%)
0~9	2	0
10~19	8	7.4
20~29	20	24.7
30~39	41	21.0
40~49	50	22.2
50~59	29	21.0
60~69	12	2.5
70~79	2	1.2

28.7%と最も多く発生しており、次いで30歳代、50歳代で好発している。この点につきアメリカの Storey and Adams⁴⁾ の報告では、20歳～60歳のものが88.8%を占め、20歳代から50歳代にかけて均等に発生していると述べている。今回の症例のような70歳代の発生は、本邦欧米ともに1%代の発生で比較的可成りまれなようである。

性別では、男109例、女70例で比率は1.6:1とやや男性に多く発生している。Seremetisら⁵⁾は1.9:1、Storey and Adams⁴⁾ は2:1、Grayら⁶⁾は1.8:1と報告しており、この男女比を見る限り本邦も欧米と同傾向を示している。

本邦例の来院時の主訴では、嚥下困難が最も多く15例(30%)を占め、その他では心窩部不快感、心窩部痛などがあるが、全く無症状で偶然の機会に見発されたものが14例(28%)とかなり多いことが特徴的であった(表2)。Seremetisら⁵⁾も約半数の症例で症状が殆んどみら

表2 食道平滑筋腫の来院時主訴 (50例について)

嚥下困難	15	30%
なし	14	28%
心窩部不快感	5	10%
心窩部痛	4	8%
悪心	3	6%
頸部異和感	3	6%
胸骨後疼痛	2	4%
食物停滞感	2	4%
食道異物感	2	4%
50		

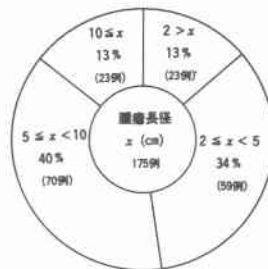
表3 食道平滑筋腫の発生部位

	本邦集計 (例) %	Storey & Adams %	Seremetis et al %
上部	(18) 10.2	6.0	11
上～中部(Iu)	(12) 6.8	—	—
中部	(38) 21.6	33.3	33
中～下部(Im)	(7) 4.0	—	—
下部	(101) 57.4	58.3	56
計	(176) 100.0	scattered 2.4	

れないと報告している。私どもの症例も、初期は軽い嚥下困難で患者自身余り意識していないが、レ線上食道の圧排所見を呈した4～5年後にはじめて明らかな自覚症状を訴えている。しかしその後も症状の増悪を認めず、さらに3年を経過して手術に至ったが、このような自覚症状の進展程度は、食道癌の早い進展と全く様相を異にするとところである。

腫瘍の発生部位については、表3のように食道下部が57.4%と最も多く、次いで中部、上部の順であり、Storey

表4 食道平滑筋腫の大きさ (175例本邦集計について)



and Adams⁴⁾, Seremetisら⁵⁾の欧米報告と一致していた。この下部に多く発生する理由として、宮本ら⁷⁾は食道下部ほど平滑筋線維が増加することに起因するのではないかと述べている。

切除された時の腫瘍の大きさについてみると(表4)、長径5～10cmに属するものが40%と最も多く、2～5cmがそれに次いでいる。一方著者らが調べ得た最大のもは、本邦で都築の報告による1,100g、欧米ではFrankら⁸⁾の報告による3,500gであった。このように一般に食道平滑筋腫は比較的大きくなってから切除される傾向がうかがわれるが、このことは腫瘍の発生部位が粘膜下であること、食道壁の進展性が良く保たれることなどから、腫瘍による閉塞症状が現われにくいためと考えられる。

食道平滑筋腫の診断に有用である検査は、食道レ線透視、食道ファイバースコープである。時には私どもの症例のように腫瘍が大きい場合には、胸部単純X線写真で腫瘍陰影が見られることもある。その場合、胸部正面写真で、通常表面平滑の円形、時に分葉化したdensityの高い腫瘍陰影が見られる。比較的小さく正面像では縦隔影に重なるような場合でも側面像で後縦隔に腫瘍陰影を認め得るものもある⁹⁾。食道透視所見として、私どもの症例でもみられたように、辺縁が平滑な陰影欠損像を示し、造影剤の通過は良好で、特徴として腫瘍が比較的大きくなくても上部食道の拡張を来たし難いことが指摘されている¹⁰⁾¹¹⁾¹²⁾。食道ファイバースコープの所見として、Lewisら¹³⁾は、① 腫瘍を被う粘膜面は正常、② 食道内腔に腫瘍による突出像があり、③ 内腔は狭小化されても内視鏡が挿入不可能なほどの狭小化は見られず、④ 腫瘍は癌腫に比し移動性に富む。の4点をあげている。私どもの症例も内腔はかなり狭小化していたが、内視鏡は胃まで挿入可能であった。

食道平滑筋腫の診断において最も問題となるのは食道

平滑筋肉腫との鑑別である。食道平滑筋肉腫では、閉塞性ポリープ様病変や潰瘍性病変を伴う場合があるとの報告¹⁴⁾もある。私どもの症例では前医の食道透視で小さな瘻孔を認めており、腫瘍が大きくなったために一時期腫瘍の一部が自潰し瘻孔を形成したものと考えられた。従って、このような瘻孔形成や潰瘍形成は、そのみでは良悪の鑑別の根拠とはなり難いものと思われた。また、内視鏡検査における生検については、粘膜面に潰瘍や炎症所見を観察すれば、積極的に行うべきであるとする¹⁴⁾¹⁵⁾¹⁶⁾意見もある。しかし、生検により粘膜下の組織を採取することは困難で、ときに穿孔、出血等の危険を伴い⁹⁾¹¹⁾、また生検により腫瘍と粘膜との癒着を招き、核出時に粘膜を損傷する可能性が増加する¹⁷⁾¹⁸⁾などの理由により生検は不適当であるとするものも少なくない。私どもの症例も内視鏡検査時、瘻孔を形成していたと思われる部位より生検を試みたが、食道粘膜が採取されたのみで、確定診断の補助にはならなかった。また、この両者を術中の肉眼的所見によっても鑑別することは困難なようで、中村ら¹⁹⁾は平滑筋肉腫の一症例を報告しているが、この手術所見によれば腫瘍は限局性で周囲への浸潤はなく、摘出は容易で局所リンパ節の腫脹もなかったとのことである。このような症例でみられるように術中の肉眼所見より確定診断をなすことも困難であり、現状では術中の生検組織診断にたよらざるを得ない。

食道平滑筋腫の治療は、Storey and Adams⁴⁾の報告によれば、核出術61.9%、食道切除術27.4%、Seremetisら⁵⁾の報告によれば、核出術86%、食道切除術10%で、粘膜を開くことなく核出可能なものが多いとしている。本間ら¹⁵⁾は、腫瘍が巨大な場合や、他病変とくに癌、憩室を合併している場合、また悪性化の疑われる場合、食道噴門部の腫瘍で一部胃内に突出している場合には、腫瘍を含めた食道切除が必要であると述べている。食道平滑筋腫の子後は良好で、Seremetisら⁵⁾は、12年間核出術による死亡例を認めていないと報告し、その他の報告も殆んど2%以下である⁴⁾²⁰⁾。食道切除を行なった症例では、少数に膿胸や血胸による死亡例が認められている。また、現在までに食道平滑筋腫の術後再発例の報告は、検索しえた文献からはみられていない。

IV. おわりに

胸部食道より発生した巨大な食道平滑筋腫の一治験例を報告し、あわせて本邦における食道平滑筋腫を集計し、分析検討を加え、若干の文献的考察を行った。

本論文の要旨は、第8回兵庫食道疾患懇話会、第128回近畿外科学会において発表した。

文 献

- 1) Harrington, S.W., et al.: Surgical treatment and clinical manifestation of benign tumors of the esophagus with report of seven cases. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **13**: 394—414, 1944.
- 2) Schmidt, H.W., et al.: Benign tumors and cysts of the esophagus. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **41**: 717—732, 1961.
- 3) 恩田芳和ほか: 食道胃重複平滑筋腫の治験例, 本邦食道平滑筋腫手術例集計の検討. *外科診療*, **20**: 1614—1620, 1978.
- 4) Storey, C.F. and Adams, W.C.: Leiomyoma of the esophagus, a report of four cases and review of the surgical literature. *Amer. J. Surg.*, **91**: 3—23, 1956.
- 5) Seremetis, M.G., et al.: Leiomyoma of the esophagus, an analysis of 838 cases. *Cancer*, **38**: 2166—2177, 1976.
- 6) Gray, S.W., et al.: Smooth muscle tumors of the esophagus. *Surg. Gynecol. Obstet.*, **113**: 205—220, 1961.
- 7) 宮本茂充ほか: 縦隔鏡検査で診断がついた上部食道平滑筋腫の一例. *胸部外科*, **32**: 214—217, 1979.
- 8) Frank, H.A., et al.: Co-occurrence of large leiomyoma of the esophagus and squamous cell carcinoma of the thymus. *N. Engl. J. Med.*, **255**: 159—164, 1956.
- 9) Schaffer, H.A.: Multiple leiomyoma of the esophagus. *Radiology*, **118**: 29—34, 1976.
- 10) Schatzki, R. and Hawes, L.E.: Tumors of the esophagus below the mucosa and their roentgenological differential diagnosis. *Rev. Gastroenterol.*, **17**: 991—1010, 1950.
- 11) Dillow, B.M., et al.: Leiomyoma of the esophagus. *Amer. J. Surg.*, **120**: 615—619, 1970.
- 12) 安永英孝ほか: 食道平滑筋腫の一治験例. *外科診療*, **21**: 865—868, 1979.
- 13) Lewis, B., et al.: Leiomyoma of the esophagus. *Surg. Gynecol. Obstet.*, **99**: 105—128, 1954.
- 14) 佐藤 源ほか: 食道平滑筋腫の臨床. *日消外会誌*, **10**: 368—376, 1977.
- 15) 本間正敏ほか: 食道平滑筋腫の2例. *外科*, **39**: 213—215, 1977.
- 16) Sweet, R.H., et al.: Muscle wall tumors of the esophagus. *J. Thorac. Surg.*, **27**: 13—31, 1954.
- 17) 猪口嘉三ほか: 教室における食道平滑筋腫症例の検討. *医学研究*, **47**: 42—45, 1977.
- 18) Myers, R.T., et al.: Benign intramural tumors and cysts of the esophagus. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **21**: 470—482, 1951.
- 19) 中村 謙ほか: 食道平滑筋腫の検討. *外科*, **40**: 969—976, 1978.
- 20) Barreiro, F., et al.: Giant esophagus leiomyoma with secondary megaesophagus. *Surgery*, **79**: 436—439, 1976.