

異常な血流支配を示した小腸平滑筋肉腫の1例

滋賀医科大学第2外科

金谷誠一郎 藤村 昌樹 山本 明 平野 正満
田野辺裕二 馬場 裕司 肥後昌五郎 森 渥視

A CASE OF LEIOMYOSARCOMA OF THE SMALL INTESTINE WITH UNUSUAL BLOOD SUPPLY

Seiichiro KANAYA, Masaki FUJIMURA, Akira YAMAMOTO,
Masamitsu HIRANO, Yuji TANOBÉ, Yuji BABA,
Shogoro HIGO and Atsumi MORI

Second Department of Surgery, Shiga University of Medical Science

索引用語：小腸平滑筋肉腫，血管造影，寄生動脈

はじめに

小腸平滑筋肉腫は比較的まれな疾患であり，従来，その術前診断は困難であるとされてきた。私どもは腹部血管造影所見により，S状結腸あるいはS状結腸間膜原発の腫瘍と術前診断した腹部腫瘍が，開腹時に小腸原発腫瘍と判明した平滑筋肉腫の1例を経験したので，若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：28歳，男性。

主訴：下腹部腫瘍，頻尿。

家族歴，既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：昭和59年12月，頻尿が出現したため近医を受診し，下腹部に拳大の腫瘍を指摘された。その後，腫瘍は急速に増大，腹部膨満を自覚し，頻尿も激しくなったため当科を受診，昭和60年1月30日入院となった。

入院時現症：身長174.4cm，体重64.2kg。下腹部正中線上，臍から恥骨上部にかけて，縦径約16cm，横径約20cmの腫瘍を触知した。腫瘍は表面平滑，辺縁明瞭で弾性軟，波動を有し，可動性に乏しく圧痛は認めなかった。他の理学的所見に異常は認めなかった。

臨床検査所見：末梢血，生化学検査所見に異常は認めなかった。検尿に異常なく，便潜血反応は陰性。腫瘍マーカーはcarcinoembryonic antigen (CEA)， α -fetoprotein (AFP)ともに正常であった。

腹部超音波所見：下腹部中央，前腹壁に接して，15×15×9cmの辺縁明瞭で，中心部が嚢胞状の腫瘍を認めた。また，腫瘍は膀胱を強く圧排していた(図1上)。

腹部 computed tomography (CT) 所見：腫瘍は前腹壁から後腹膜に至る下腹部ほぼ全体を占め，enhancement良好であった。ただし中心部はlow densityを示し，中心壊死と考えられた(図1下)。

消化管造影検査所見：腫瘍による小腸およびS状結腸の圧排を認めたが，粘膜像に異常所見は指摘しえなかった。

腹部血管造影所見：回腸動脈およびS状結腸動脈から，腫瘍への不整血管の増生と濃染像を認めた。S状結腸動脈からの血流が腫瘍のほとんど全域を支配し，回腸動脈からの血流はわずかに認められるにすぎなかった(図2, 3)。

以上の所見より，S状結腸あるいはS状結腸間膜から発生した悪性腫瘍と診断し，昭和60年2月21日開腹術を施行した。

手術所見：腫瘍は小児頭大で下腹部を占拠し，トライツ靱帯から約240cmの回腸から壁外性に発生していた。また，腫瘍とS状結腸間膜との間には，太い血管を含む索状物が存在した。その他，小腸間膜に腫大リンパ節を多数認める以外，腹水，腹腔内播種，肝転移などは認めなかった。前述の索状物を結紮切離，腫瘍の口側，肛門側それぞれ約50cmの小腸と，腫大した腸間膜リンパ節を腫瘍とともに一塊として摘出した。

切除標本：腫瘍は大きさ16×14×9.5cm，重さ1,800gで，中心壊死を起し，内部に約250mlの血性の液体

図1上 腹部超音波所見。中心部が嚢胞状の巨大な腫瘍を認める。

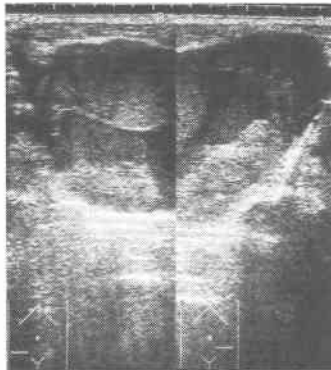


図1下 腹部 enhancement CT 所見。内部に low density な部分を含み、実質部分は enhancement 良好である。

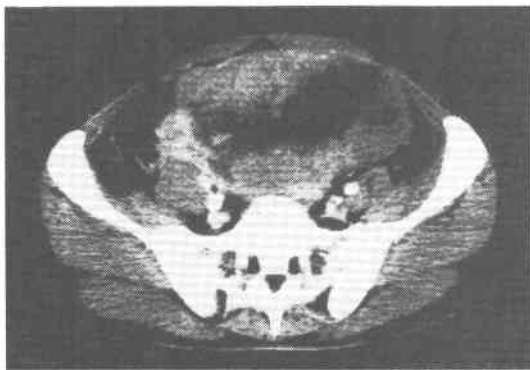
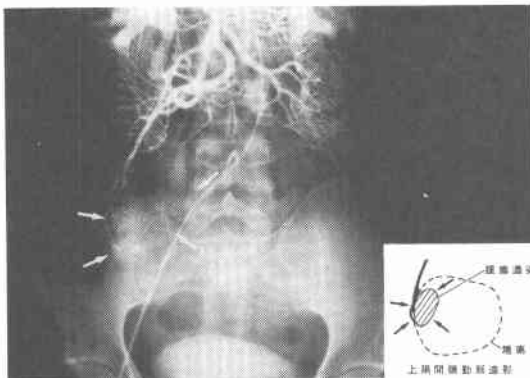


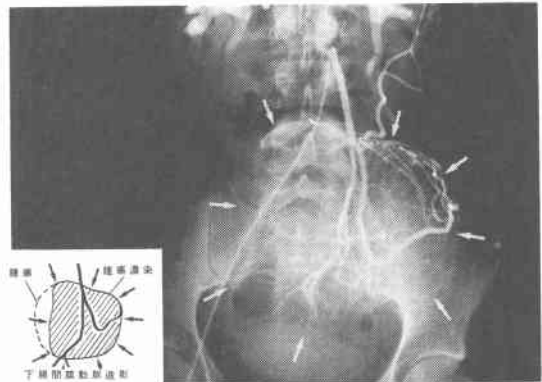
図2 上腸間膜動脈造影所見。矢印の部分に、回腸動脈からの腫瘍濃染像を認める。



が貯留していた。また腫瘍部分の回腸粘膜面に潰瘍を伴う小隆起を認めた(図4)。

組織学的所見：腫瘍は細胞成分が豊富で、紡錘型細

図3 下腸間膜動脈造影所見。S状結腸動脈からの腫瘍濃染は極めて広範囲である。



胞が束状にかつ交錯して密に増殖していた。胞体は好酸性を示し、核は不整で、多数の核分裂像を認め、小腸原発の平滑筋肉腫と診断された。リンパ節転移は認められなかった(図5)。

術後経過：術後約6か月で多発性肝転移を来し、肝動脈塞栓術を施行したが効果なく、術後約14か月で死亡した。

考 察

小腸平滑筋肉腫は比較的まれな疾患であり、八尾ら¹⁾による本邦報告例の集計では、1970年～1979年の10年間に、十二指腸を除く小腸原発の悪性腫瘍は678例を数え、そのうち176例(26.0%)が平滑筋肉腫である。そして、その特徴は60歳台に頻度が高く、2.2:1で男性優位。上部空腸に好発し、全例単発。臨床症状は腫瘤触知、腹痛、顕出血などが多くと報告している。また、その約半数の例で最大径15cm以上とされているが、本症の発育形態は一般に、壁内型、管内型、管外壁に分類され、そのほとんどが管外型であり²⁾³⁾、また小腸が可動性に富むため、腫瘍が大きくなるまで症状の出現が乏しく、発見時には巨大な腫瘍になっているものと推定出来る。

本症の診断に関しては近年、小腸造影、小腸内視鏡、腹部血管造影などの有用性が報告され、特に血管造影検査はその原発部位、広がり、良・悪性の鑑別に極めて有用とされている。

本症の血管造影所見上の特徴は豊富な腫瘍血管の増生、腫瘍濃染像、動静脈の短絡形成などがあげられ、自験例でもこれらの所見すべてを認めている。

血管造影による小腸平滑筋腫腫瘍の良・悪性の鑑別は比較的難しく、渡辺ら⁴⁾は、腫瘍の周辺の血管が輪状

図4 左：切除標本，右：回腸粘膜面に腫瘍が一部突出し，中心部（矢印）に潰瘍形成を認める。

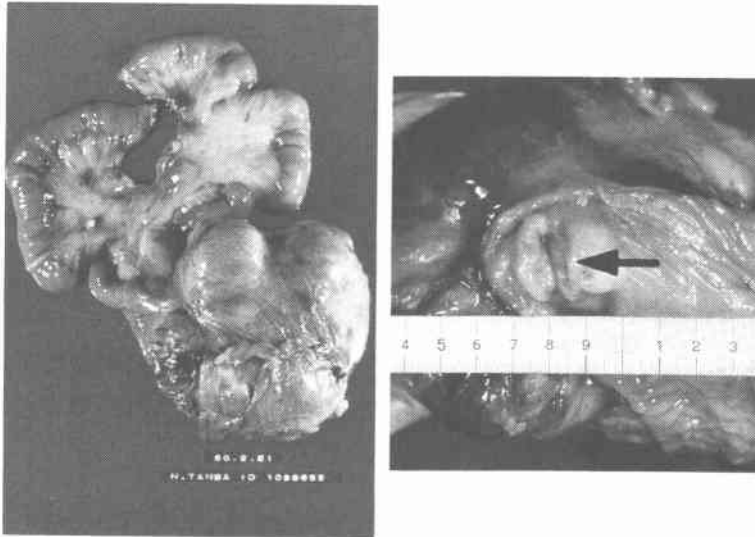
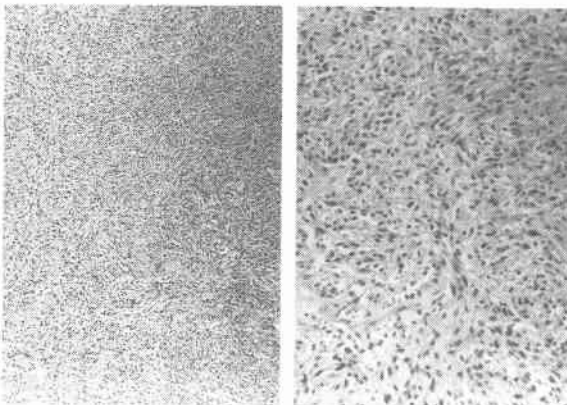


図5 組織学的所見(HE染色, $\times 40$, $\times 100$). 紡錘型の細胞が束状に複雑に交錯している。



の走行を示し，その血管にいわゆる encasement の像がなく，境界が平滑かあるいは分葉状を呈しても明瞭であれば良性と判定出来，また血管に encasement や周辺への浸潤の所見が認められれば悪性と判定出来るとしている。

一方，部位診断は比較的容易とされており，実際，私どもが調査しえたた限りでは，1981年から1986年の十二指腸を除く，小腸平滑筋肉腫の本邦報告例のうち，血管造影所見の記載の明らかなもの16例中13例(81.3%)で，術前，部位診断が可能であったと報告している。

自験例では，腫瘍は回腸動脈，S状結腸動脈の2本の動脈から血流を受け，その血流支配がS状結腸動脈優位であったために，原発部位の診断を誤った。自験例のごとく，数か所からの血流支配を受けていたとする5例の小腸平滑筋肉腫の報告が見られるが，うち4例^{9)~11)}では血流支配の優劣により，容易に原発部位の診断は可能であり，1例⁹⁾のみ，大網動脈からの血流が豊富なため原発部位の診断が困難であったとしている。しかし，この例でも，大網動脈からの血流支配が優位ではなかったとされている。

Francisら¹⁰⁾は，腹部腫瘍の血流には通常の血流支配によるもの(regular blood supply)，変則的な血流支配あるいは奇形によるもの(variant or anomalous blood supply)，寄生動物によるもの(parasitic blood supply)の3つが併存し，parasitic blood supplyは他の器官もしくは組織への腫瘍浸潤，あるいは隣接する血管の末梢での吻合の存在により出現するとしている。また，Lamarqueら¹¹⁾は一般に，腫瘍が大きくなればなるほど血流の需要が増大し，そのため腫瘍はparasitic blood supplyを多く必要とするようになり，parasitic blood supplyの存在のため，腫瘍の支配血管に基く原発部位の診断は困難になってくるとしている。

自験例の場合，腫瘍とS状結腸間膜との間の索状物を，腫瘍の浸潤により形成されたものと考えれば，急速な腫瘍増大により，S状結腸間膜浸潤後，より血流の

豊富な S 状結腸動脈からの血流 (parasitic blood supply) をより多く取り込んだと推測することが出来る。あるいは、Francis らのいう variant or anomalous blood supply の可能性も否定することは出来ないが、いずれにしても、自験例のごとく、原発部位以外からの血流支配が優位となっている報告は見当たらず、極めてまれな症例と考えられる。

血管造影検査に際しては、自験例のように、血流支配の優劣のみでは原発部位の診断が困難な症例が存在することを念頭に置く必要があり、その診断には臨床所見、小腸造影などの他の検査所見を合わせ、総合的に診断することの重要性があらためて示唆された。

本症の予後は悪く、佐々木ら²⁾は、5 年生存率は 13% と低く、術中転移の見られない例でも半数近くが再発死すると報告している。本症の転移部位・臓器は肝およびリンパ節に多く³⁾。手術に際しリンパ節をも含め、可及的広範囲な小腸切除が望ましいとされている。自験例では、手術時肝転移を認めなかったにもかかわらず、術後約 6 か月で多発性肝転移を来し、術後約 14 か月で死亡した。術後、化学療法や肝動脈塞栓術が奏効した例は報告されていないが、肝転移に対し肝切除を行い、良好な結果を得たとする報告¹²⁾¹³⁾もみられ、切除可能な転移巣に対し積極的に切除を試みることは、本症の予後改善にとって有意義と考えられる。

おわりに

術前、血管造影所見から、S 状結腸あるいは S 状結腸間膜原発の腫瘍と診断した小腸平滑筋肉腫の 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) 八尾恒良, 日吉雄一, 田中啓二ほか: 最近 10 年間 (1970—1979) の本邦報告例の集計からみた空・回

腸腫瘍。胃と腸 16: 935—941, 1981

- 2) 佐々木迪郎, 番場敏行, 上村友也ほか: 小腸における平滑筋肉腫について—自験例および本邦報告例の予後—。外科 33: 301—308, 1971
- 3) 草島義徳, 倉地 圓, 藤田秀春ほか: 巨大空腸平滑筋肉腫の 1 治験例—並びに本邦小腸平滑筋肉腫 186 例の検討—。外科治療 42: 503—507, 1980
- 4) 渡辺俊一, 大畑武夫, 丸山雄造: 消化管の平滑筋肉腫と平滑筋肉腫—その動脈造影所見について—。臨放線 21: 335—342, 1976
- 5) 中神一人, 二村雄次, 前田正司ほか: 血管造影が鑑別診断上有用であった空腸平滑筋肉腫の 1 例。日臨外医会誌 42: 800—805, 1981
- 6) 諏訪 昭, 飯野朗子, 朝倉 均ほか: 特異な画像診断所見を呈した巨大な空腸平滑筋肉腫の 1 例。日消病会誌 83: 2232—2237, 1986
- 7) 山口真彦, 林 仁薫, 木下 勝ほか: 管内管外型発育を呈した空腸平滑筋肉腫の 1 例。外科 46: 975—978, 1984
- 8) 三上勝也, 町田純一郎, 落合浩平ほか: 小腸平滑筋肉腫の 1 治験例。函館医誌 7: 65—68, 1983
- 9) 梁 英樹, 高崎 健, 野方 尚ほか: 回腸巨大平滑筋肉腫の 1 例—自験小腸平滑筋肉腫 8 例の診断等についての検討—。外科 45: 660—663, 1983
- 10) Francis FRJ, Plinio R, Raymond EA et al: Anomalous and parasitic arterial blood supply in the abdomen. Radiology 96: 261—268, 1970
- 11) Lamaque JL, Tribay X, Bruel M et al: The parasitic blood supply of abdominal masses. Eur J Radiol 1: 104—113, 1981
- 12) 奥隅淳一, 咲田雅一, 土井正一ほか: 肝拡大右葉切除しえた消化管平滑筋肉腫肝転移の 2 手術治験例。京都府医大誌 93: 705—710, 1984
- 13) 吉田雅博, 竜 崇正, 浅野武秀ほか: 9 年後に肝、腹膜転移を来した空腸平滑筋肉腫の 1 例。日消外会誌 19: 2975—2078, 1986