

## 食道平滑筋肉腫の1例

日本赤十字社長崎原爆病院外科, \*同 放射線科, \*\*同 病理

中尾 丞 澤井 照光 長谷川 宏 石井 俊世  
柴田 和行 野口 恭一 松永 尚文\* 高原 耕\*\*

### A CASE REPORT OF LEIOMYOSARCOMA OF THE ESOPHAGUS

Susumu NAKAO, Terumitsu SAWAI, Toshiyo ISHII,  
Kazuyuki EIDA, Kyouichi NOGUCHI, Naofumi MATSUNAGA\*  
and Osamu TAKAHARA\*\*

Department of Surgery, \*Department of Radiology and \*\*Department of Pathology,  
Japanese Redcross, Nagasaki Genbaku Hospital

索引用語: 食道平滑筋肉腫

#### はじめに

食道平滑筋肉腫は、まれな疾患であるが食道平滑筋腫との鑑別が困難な場合もあり、診断の確定や治療方法の選択に慎重な配慮を要する疾患である。今回その1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

#### 症 例

患者: 63歳, 男性。

主訴: 心窩部痛, 嘔吐。

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 特になし。

現病歴: 昭和62年11月上旬より心窩部痛出現, 昭和62年11月14日食物残渣の嘔吐があったため来院した。

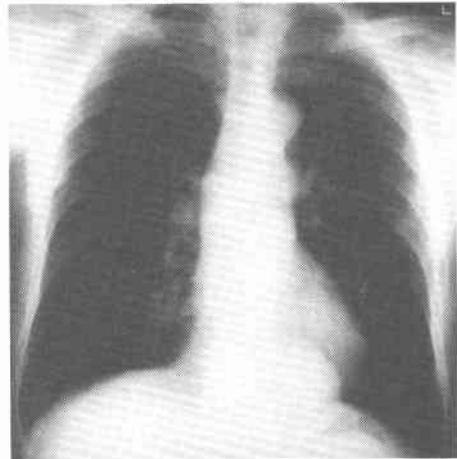
現症および検査所見: 栄養良好, 貧血・黄疸なく, 表在リンパ節の腫脹もなかった。血液一般, 血清生化学検査に異常値はなく, Carcinoembryonic antigen 3.0ng/ml,  $\alpha$ -Fetoprotein 5.0ng/ml と正常であった。

胸部正面 X 線で心陰影と重なり, 横隔膜に接して 7.5×6.5cm の均一な陰影を認めた。左側面 X 線と考え合わせると後縦隔に存在していた (図1)。

食道造影では食道下部を左側より圧迫していたが, バリウムの通過は良好であった。粘膜面は平滑で潰瘍などはなく, 口側食道の拡張も認めなかった (図2)。

内視鏡では門歯より33cmの食道左側後壁より膨隆が認められた。粘膜面には潰瘍はなく, 内視鏡の通過も容易であった。生検では正常粘膜しか得られなかつ

図1 胸部正面 X 線写真。心陰影に重なって腫瘤影がみられる。



た。

Computed Tomography (CT) 検査では縦隔に食道を圧排する腫瘤がみられた。大動脈とも接していたが浸潤はないようであった。CT値は54で, 造影にて101となり造影剤増強効果が認められた (図3)。

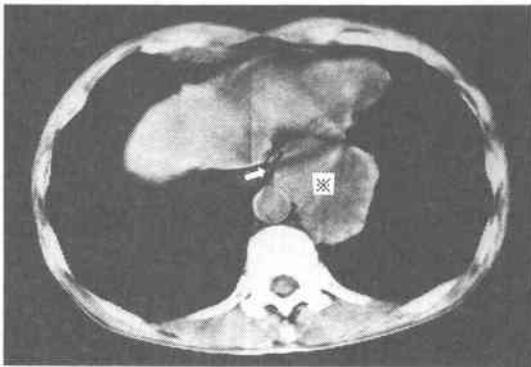
腹腔動脈造影では腫瘤に一致して左胃動脈の横隔膜枝を栄養動脈とする血管が腫瘍内に進入し, 腫瘍内で管径不同の新生血管が増殖し, pooling もみられた。以上の所見より食道平滑筋腫または平滑筋肉腫が疑われた (図4)。

手術所見: 左第7肋間で開胸を行った。腫瘍は食道縦走筋と連続しており, まず腫瘍のみ摘出して凍結迅

図2 食道造影, 下部食道が左側より圧排されている。



図3 胸部CT断層(※腫瘍, →食道)。下部食道が腫瘍により圧排されている。腫瘍の大動脈への浸潤はない。



速標本に提出すると平滑筋肉腫との診断であった。このため、腫瘍発生部位を含む下部食道を約7cm切除した。リンパ節の腫脹は認めなかった。食道再建は開腹術を加えて15cmの空腸を胸部食道と胃の間に間置した。術後経過は良好であった。

切除標本：腫瘍は6.0×5.5cm, 弾性硬, 境界は比較的明瞭であった。断面は不整な分葉状であった(図5)。

組織学的所見：HE染色では好酸性の紡錘型細胞が錯綜しつつ、増殖し周囲固有筋層への浸潤像もあり mitosis も散見された。それらの核はところによっては異型性を伴い、myxomatous change や cystic

図4 腹腔動脈造影, 左胃動脈の横隔膜枝を栄養動脈とする血管が腫瘍内へ侵入し、腫瘍内で新生血管が増殖している。

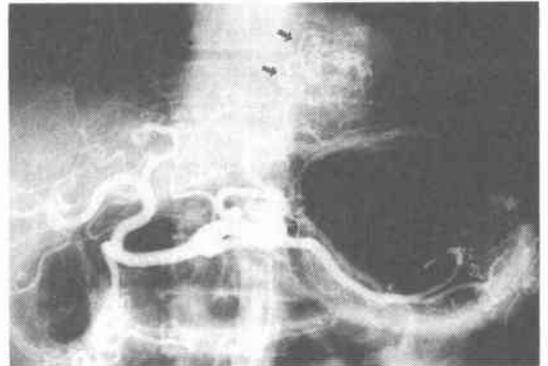
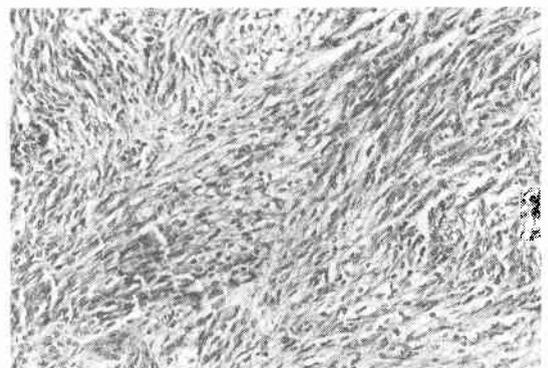


図5 切除標本, 腫瘍は食道筋層から発生していた。断面は充実性で不規則な分葉状を呈していた。



図6 腫瘍組織(H.E. 250×), 好酸性の紡錘型細胞が錯綜して増殖している。

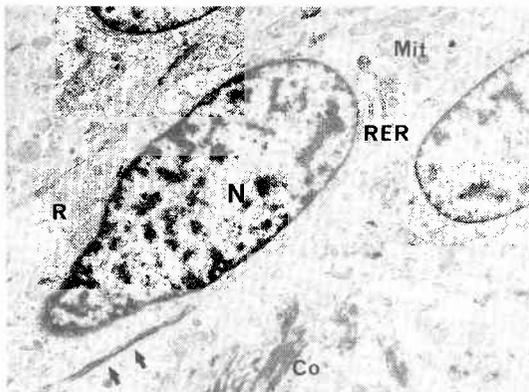


degeneration もみられ平滑筋肉腫であった(図6)。

免疫組織化学染色(Peroxidase-antiperoxidase法)による検索では Epithelial membrane antigen, S-100, Factor VIII-related antigen,  $\alpha$ -1-antitrypsin, Ker-

図7 電顕像(4,500×)

N:核, ↑↑:基底核, RER:粗面小胞体, Mit:ミトコンドリア, R:遊離リボゾーム, Co:膠原線維



atin, Desmin, Vimentin (Dakopatts 製)のいずれも陽性所見を得られなかった。

電顕的には核は楕円形ないし紡錘型でクロマチンは粗い。胞体は細長いものが多く、ところどころ断片的に基底膜とそこに一致して dense patch が散見された。しかし picnocyctic vesicle, microfilament は見いだせなかった。細胞小器官も乏しく、少数のミトコンドリア、粗面小胞体が散在し、遊離リボゾームは比較的多く認められた(図7)。

### 考 察

食道平滑筋肉腫の頻度について Suzuki ら<sup>1)</sup>は外科手術症例における食道悪性腫瘍11, 932例中21例(0.17%)、剖検例でも4,995例中8例(0.16%)であったと報告している。Chalkiadakis ら<sup>2)</sup>は文献による報告例96例の集計で、男性57例、女性39例(男:女=1.46:1)で男性に多く、平均年齢57歳(25~78歳)であったと述べている。本邦報告例は柴田<sup>3)</sup>によると37例であり、男性23例、女性13例、不明1例でやはり男性に多く、年齢は25歳から71歳でやはり50歳代が多い。症状は報告例の72~86%に嚥下困難がみられる<sup>2)4)5)</sup>。他の症状としては体重減少、胸骨後部痛、心窩部痛、嘔吐などがあるが食道癌の場合と同様にある程度進行しないと症状が出てこないようである。本邦報告例では腫瘍径5cm以上が80%を占めている<sup>4)</sup>。発生部位は Chalkiadakis ら<sup>2)</sup>の集計では、上部食道21%、中部食道33%、下部食道42%であり、本邦報告例でも上部食道4例、中部食道15例、下部食道18例と中下部食道に多い<sup>3)</sup>。肉眼的に腫瘍の型は、ポリープ型ないし限局型と、浸潤型ないしび漫性に分けられ、Rainer ら<sup>6)</sup>

は18:11でポリープ型が多かったと報告している。本邦報告例でも限局型が多い。

食道造影で腫瘍影を認めるが、本症例のように腫瘍が主に管外に発育したものでは外部からの圧迫様に辺縁が滑らかな陰影欠損として造影される。腫瘍が大きくなると通過障害を来して口側食道が拡張することもある。内視鏡検査では管内に発育するものはポリープ状に、壁内や壁外に発育するものは半球状隆起や立ち上がり平滑な広基性隆起として観察される。大きくなると表面の凹凸不整や、表面中央にびらんや潰瘍を伴うこともある。CT検査では辺縁平滑な腫瘍として描出される。筋原性腫瘍は筋肉組織を主体とした腫瘍であり、さらに正常筋組織より血流に富み造影剤静注による増強効果がみられる<sup>7)</sup>。血管造影では腫瘍内で新生血管の増殖がみられるが平滑筋腫でも同様の所見がみられるため良性、悪性の鑑別は難しいといわれる<sup>8)</sup>。

本邦報告例によれば、術前に平滑筋肉腫の確定診断が得られたのは切除例の20%であったという<sup>9)</sup>。特に食道平滑筋腫との鑑別が問題となる。これは粘膜下腫瘍であるため表層を上皮が被覆しているものが多く生検にて的確に組織を採取し難いためである。潰瘍形成があれば、そこからの生検で診断がつく可能性がある。しかし Bruneton ら<sup>10)</sup>が、全消化管の平滑筋肉腫と平滑筋腫700例を集計し、食道平滑筋肉腫では26.3%に、食道平滑筋腫では1.4%に潰瘍形成がみられたと報告しているように潰瘍のない症例が多い。

病理診断は、紡錘形細胞の不規則な束状配列、核の大小不同、著明な核分裂像、固有筋層の浸潤破壊があれば典型的であるが、これらの所見が不十分な場合は平滑筋腫との鑑別が困難なこともある。悪性度の判定基準としては細胞密度と核分裂像の頻度が重視されている。本例の場合、細胞異型、細胞密度、周囲組織への浸潤像、核分裂像などいずれの点でも定型的な平滑筋肉腫と診断することができた。平滑筋肉腫は免疫組織化学的に細胞骨格の一種である Desmin 陽性の報告<sup>11)12)</sup>が多いが、本例は陰性であった。電顕的にも断片的な基底膜と dense patch のみが認められ microfilament などは見出されず、細胞小器官も乏しく、かなり分化度の低い平滑筋肉腫<sup>13)</sup>と考えられた。

術前に診断が得られなければ、本例のように術中の迅速凍結標本病理診断によるが、それでも判定が困難な場合は、周囲への浸潤の有無や腫瘍が摘出しやすいかどうか、腫瘍の硬度や剖面の性状も観察し、潰瘍の有無を参考にしなければならない<sup>9)</sup>。また平滑筋腫は

壁内に存在することが多く、管内性、壁外性に発育するものは少ない<sup>10)14)</sup>。Seremetisら<sup>15)</sup>は平滑筋腫が polypoid lesion であることは1%であったと報告している。したがってポリープ状病変であれば平滑筋肉腫が疑われる。

治療は平滑筋肉腫の診断がつけば切除がなされなければならない。拇指頭大の食道肉腫の剔出術を行って放射線治療を行ったが1年後再発した症例の報告<sup>16)</sup>があるように、少なくとも健常部位を含めた切除がなされるべきであろう。他の部位の平滑筋肉腫と同じくリンパ節転移は少ない。このため食道癌のような広範な系統的リンパ郭清は不必要と考えられる。

化学療法が有効かどうかについては症例も少なく不明であるが、著効を示した報告例はない。放射線療法に関しては、切除不能の症例に行って腫瘍の縮小効果がみられたという報告<sup>17)18)</sup>や、照射後に縮小した腫瘍を切除した報告<sup>19)</sup>がある。

予後は、限局型やポリープ型は比較的良く、浸潤型は不良とされている。本邦報告例でも浸潤型に2年以上の生存例はない。再発・転移形式は局所再発および肝転移が多い。

#### おわりに

まれな疾患である食道平滑筋肉腫を経験したので文献的考察を加えて報告した。まれな疾患とはいえ、頻度的に多い平滑筋腫と誤り、例えば核出術で済ませてしまうと、再手術や再発などの困難な問題を生じるので、術前・術中の慎重な対処が必要である。

#### 文 献

- 1) Suzuki H, Nagayo T: Primary tumor of the esophagus other than squamous cell carcinoma. Histologic classification and statistics in the surgical and autopsied material in Japan. *Int Adv Surg Oncol* 3: 73-109, 1980
- 2) Chalkiadakis G, Wihlm JM, Weill-Bousson M et al: Leiomyosarcoma of the esophagus. *Dig Surg* 2: 164-168, 1985
- 3) 柴田佳久, 鈴木一男, 熊谷太郎ほか: 特異な X 線像を呈した上部食道平滑筋肉腫の1例. *臨外* 42: 1425-1428, 1987
- 4) 島津久明, 小堀鷗一郎, 団野 誠ほか: 食道平滑筋腫と平滑筋肉腫—自験例9例の報告と本邦文献上報告例の分析—. *日外会誌* 84: 355-367, 1983
- 5) Partika EK, Sanowski RA, Kozarek RA: Endoscopic diagnosis of a giant esophageal leiomyosarcoma. *Am J Gastroenterol* 75: 132-134, 1981
- 6) Rainer WG, Brus R: Leiomyosarcoma of the esophagus; review of the literature and report of 3 cases. *Surgery* 58: 343-350, 1965
- 7) 本田 浩, 中田 肇, 中山 卓ほか: 消化管筋原性腫瘍のCT診断. *臨放線* 29: 285-288, 1984
- 8) 渡辺俊一, 太畑武夫, 丸山雄造: 消化管の平滑筋腫と平滑筋肉腫—その動脈造影所見について—. *臨放線* 21: 335-342, 1976
- 9) 藤田博正, 川原英之, 吉松 博ほか: 食道平滑筋肉腫2例の手術経験と本邦報告例の分析. *日臨外医会誌* 45: 1466-1275, 1984
- 10) Bruneton JN, Drouillard J, Roux P et al: Leiomyoma and leiomyosarcoma of the digestive tract: A report of 45 cases and review of the literature. *Eur J Radiol* 1: 291-300, 1981
- 11) 向井 清: 免疫組織化学の日常病理診断への応用. *病理と臨* 16: 73-74, 1988
- 12) 向井万起男, 鳥潟親雄: 細胞骨格 (cytoskeleton) の免疫組織化学. *病理と臨* 16: 161-168, 1988
- 13) 小野江為則: 電顕腫瘍病理学. 南山堂, 東京, 1982, p53-55
- 14) 小林康人, 勝見正治, 河野暢之ほか: 食道平滑筋腫の3例—本邦264例の分析—. *日臨外医会誌* 42: 169-176, 1981
- 15) Seremetis MG, Lyons WS, Deguzman VC et al: Leiomyomata of the esophagus. An analysis of 838 cases. *Cancer* 38: 2166-2177, 1976
- 16) 山内秀夫, 杉田輝地, 野田辰男ほか: 若年者に発生した頸部食道平滑筋肉腫の1例. *外科診療* 14: 599-602, 1972
- 17) Athanasoulis CA, Aral IM: Leiomyosarcoma of the esophagus. *Gastroenterology* 54: 271-274, 1968
- 18) 小金丸道彦, 山辺忠厚, 矢野広志ほか: 放射線治療の著効を奏した巨大食道平滑筋肉腫の1剖検例. *臨放線* 17: 490-498, 1972
- 19) Wolfel DA: Leiomyosarcoma of the esophagus. *Am J Roentgenol* 89: 127-131, 1963