

## 術前に診断しえた直腸平滑筋肉腫の1 治験例

加古川市民病院外科

金丸 太一 柏木 亮一 橋本 可成  
磯 篤典 福田 裕 藤本 彊

症例は67歳男性、肛門部不快感および便通異常を主訴に来院、術前診断、直腸平滑筋肉腫にて腹会陰式直腸切断術施行した。切除標本は大きさ12×6×6cmで剖面は灰白色、分葉状に増殖し中心部に壊死を認めた。組織学的には腫瘍細胞は紡錘形ないし類円形で束状に増殖し、核分裂像は強拡大10視野平均4.2個認めた。

直腸平滑筋肉腫は比較的まれな疾患であり本邦では1989年までに134例が報告されている。報告例を検討すると術前に平滑筋肉腫と診断された症例は43例(31.9%)であり術前診断の困難性をうかがわせる。手術は、radical resectionが102例(75.6%)に、local resectionは25例(18.5%)に施行されていた。本疾患は病理形態像や手術法により予後が著しく異なることが報告されており診断するにあたっては生検による病理形態像にとどまらず画像診断による腫瘍形態像を考慮した総合診断が肝要であり、手術は癌に準じた手術が必要であると考えられた。

**Key words:** leiomyosarcoma of the rectum, abdominoperineal resection

### はじめに

直腸に原発する平滑筋肉腫は比較的まれである。今回われわれは術前に直腸平滑筋肉腫と診断し直腸切断術を施行しえた症例を経験したので報告する。

### 症 例

症例：67歳、男性。

主訴：肛門部不快感および便通異常。

家族歴：弟が昭和63年10月直腸癌にて直腸切断術をうけている。

既往歴：昭和59年肝機能障害にて入院加療。

現病歴：昭和63年12月頃より排便時肛門部に腫瘤を触知、同時に便の細小化を自覚するも放置していた。平成元年10月頃より便意あるも排便のないことがしばしばあり、腹満感も徐々に増強するため、近医を受診、直腸腫瘤を指摘されて11月17日当院を紹介された。期間中、排便時の出血および疼痛の自覚なし。

入院時現症：体格中等度、血圧112/80mmHg、脈拍74/分整、体温36.6℃、貧血、黄疸を認めず、胸腹部の理学的所見に異常を認めず、表在リンパ節も触知せず。直腸指診にて肛門縁直上よりほぼ内腔を埋める巨大な腫瘤を直腸粘膜下に触知した。腫瘤は可動性なく、9

時方向中心で4時から12時におよび、弾性硬であった。粘膜面には異常を認めなかった。

入院時検査成績：血清蛋白6.1mg/dl、コリンエステラーゼ0.63 $\mu$ PHと軽度低下を認めるも貧血なし。腫瘍マーカーではcarcinoembryonic antigen (CEA) 5.5 ng/mlと軽度上昇、酸性フォスファターゼおよびcarbohydrate antigen 19-9 (CA19-9)は正常であった。便潜血反応は陰性であった。

注腸造影：肛門縁直上より右側壁中心に表面平滑で柔らかい陰影欠損を認めた (Fig. 1)。

腹部超音波検査：膀胱を頭腹側に圧排する円形で内部エコー不均一な腫瘤像を認めた (Fig. 2)。

Computed tomography (CT)：腫瘤は小骨盤腔をほぼ占居するように存在し、直腸ガスは左側へ圧排されていた。造影CTでは中心部に低吸収領域を有する濃染される腫瘍として認められた (Fig. 3)。

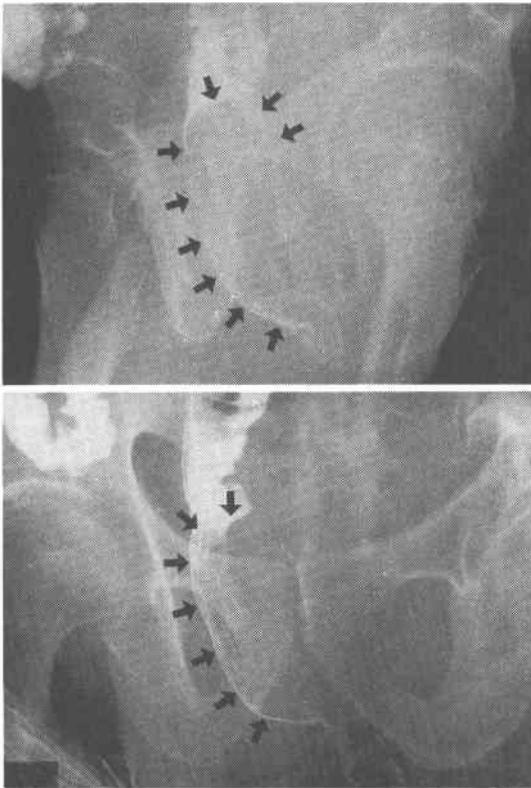
腹部血管造影：内腸骨動脈を栄養血管とする腫瘍血管の増生、既存血管の広狭不整、静脈層での腫瘍陰影を認め、悪性腫瘍が疑われた (Fig. 4)。

生検：経肛門的に採取した生検では平滑筋腫の診断をえた。

以上、画像診断を含めて考慮し直腸原発の平滑筋肉腫の診断にて平成1年12月13日手術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開にて開腹、肝、腹膜およ

**Fig. 1** Ba enema in the prone position reveals a large filling defect in the rectum

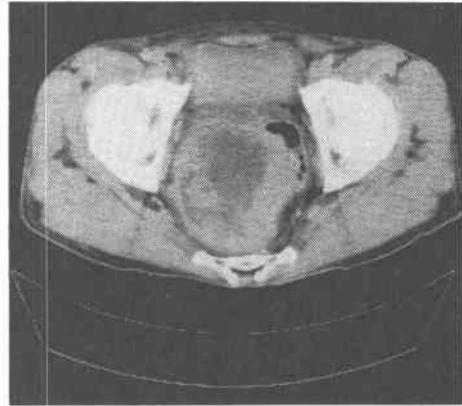


**Fig. 2** Ultrasonography showing intrapelvic tumor with central low density.



び腸間膜に異常所見認めず。腫瘍は腹膜反転部を押し上げるように存在しており、膀胱、前立腺、精嚢への浸潤認めず、腹会陰式直腸切断術を施行した。

**Fig. 3** Computed tomography of pelvis showing the large mass with central low attenuation



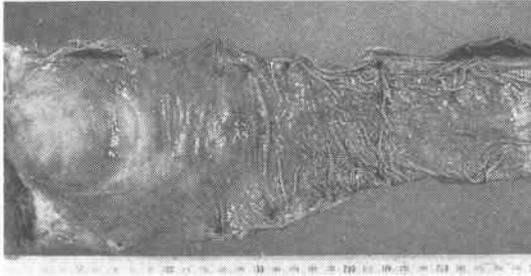
**Fig. 4** Arteriography demonstrated a richly vascularized and arterial invasion, supplied by internal iliac artery.



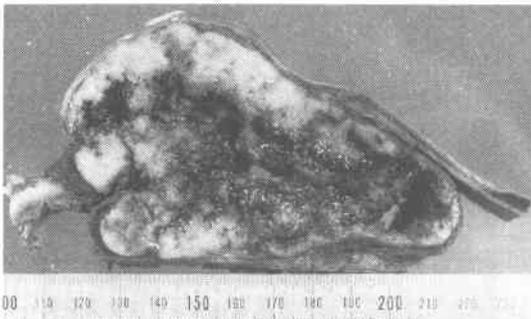
切除標本：大きさは12cm×6cm×6cmであった。割面では腫瘍は灰白色で分葉状に増殖し、中心部には壊死をとまっていた。直腸粘膜に潰瘍形成は認めず (Fig. 5, 6)。

病理所見：腫瘍細胞は紡錘形ないし類円形を呈し、束状に種々の方向に交錯して増殖していた。核分裂像

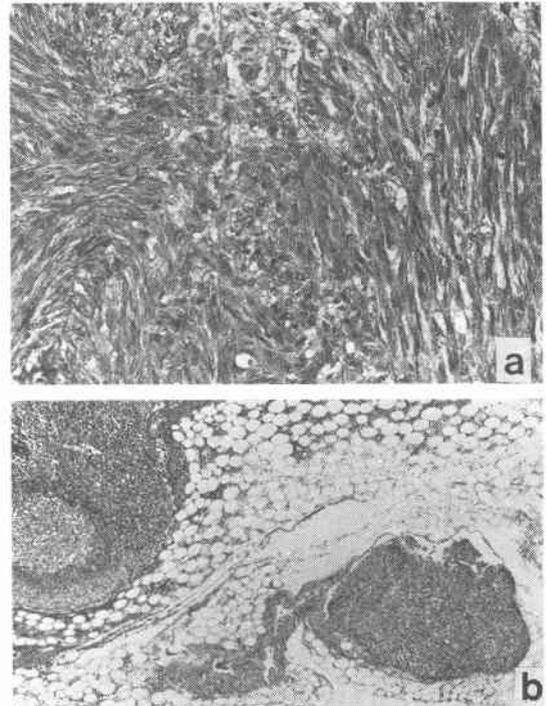
**Fig. 5** Gross appearance: submucosal tumor of the rectum (Rb) recognized, 12×6×6cm in size, with no ulcer



**Fig. 6** Cut surface showing submucosal gray-white tumor with central necrosis



**Fig. 7** a) In hematoxylin-eosin stain the tumor consisted of spindle, oval-shaped cells with mitotic rate 4.2 per 10 high power fields. b) Tumor invasion to the small vessels



は強拡大10視野平均4.2個認め、さらに摘出した252番リンパ節周囲の脈管内に腫瘍細胞の増殖を認めた (Fig. 7a, b)。PAP法による免疫組織染色ではS-100陰性、Vimentin陽性、Desmin陰性であった。

以上より直腸平滑筋肉腫と診断した。術後経過良好にて平成2年2月12日退院した。

#### 考 察

直腸原発の平滑筋肉腫は比較的まれな疾患であるが、1955年岩井ら<sup>1)</sup>がはじめて報告して以来、1989年までにわれわれの渉猟しえたかぎりでは134例が報告されている。その臨床病理学的特徴は諸家の報告<sup>2)~4)</sup>に詳しいが、自験例を含め要約すれば以下のようである。

① 年齢および性：29~78歳に分布し平均年齢は57.0歳で、男女比は1.7：1で男性に多く認めた。

② 主症状：便秘、便柱細小化などの排便障害が34.4%、肛門出血や血便が34.4%と最も多く、ついで腫瘍触知11.5%、肛門痛10.9%、排尿障害4.4%の順であった。

③ 占居部位：肛門縁から2cm未満に腫瘍が存在す

る症例が41例(30.4%)と最も多く、以下2~4cmが35例(26.0%)、4~6cmが32例(23.7%)、6~8cmが1例(1.0%)、8~10cmが3例(2.2%)、10cm以上が6例(4.5%)であった。

④ 腫瘍の大きさ：記載されている93例中、最大長径20cm、最小長径1.5cmで、4cm未満が21例(22.6%)、4cmから10cmが50例(53.8%)、10cm以上が29例(31.2%)であった。

⑤ 潰瘍形成の有無：記載のある97例中52例(53.6%)に潰瘍を認めた。

⑥ 術前診断：正診率は135例中43例(31.9%)であり、以下直腸癌13例(9.6%)、平滑筋腫12例(8.9%)、直腸腫瘍、粘膜下腫瘍、悪性腫瘍など23例(7.0%)、術前診断記載なく手術されている症例が44例(32.6%)に認められた。

⑦ 術式：腹会陰式直腸切断術、前方切除、骨盤内臓器全摘術など悪性腫瘍に準じ切除された症例が135例中102例(75.6%)、腫瘍摘除または直腸部分切除が25例(18.5%)、人工肛門造設術8例(5.9%)であった。

直腸平滑筋肉腫の予後について第11回大腸癌研究会<sup>9)</sup>の集計によれば5年生存率は治癒切除では78.0%と直腸癌の5年生存率61.1%と比較して悪くはない。しかし Evans<sup>9)</sup>は腸管に発生した平滑筋肉腫56例(うち直腸平滑筋肉腫4例)を細胞分裂数より low grade, high grade に分類して予後を検討し、前者の5年生存率は70%, 後者のそれは5%以下と報告している。また Khalifa<sup>7)</sup>は直腸平滑筋肉腫135例の手術症例を local resection と radical resection について予後を検討し、前者では5年生存率41.9%, 再発率67.5%, 後者ではそれぞれ36.6%, 19.5%と報告しており、その病理形態像や手術法により予後は著しく異なり本疾患を診断治療するにあたっては慎重な検討が必要である。しかし今回の検索において、術前に平滑筋肉腫と診断された症例は43例(31.9%)しかなく実際にはその困難性がうかがわれる。

注腸検査にて潰瘍形成がなければその特徴的所見より粘膜下腫瘍との診断は比較的容易である。Clark<sup>8)</sup>はCTの平滑筋肉腫の特徴として中心壊死を伴う管外発育性腫瘤で、造影により壊死周囲の腫瘍辺縁の増強を伴うとしており自験例と一致する所見である。血管造影の有用性について岡田<sup>10)</sup>らは腫瘍の性状や原発部位を知るうえにおいて積極的に施行されるべきと報告している。一方 Uflacker<sup>9)</sup>は平滑筋腫でも腫瘍血管の増生や腫瘍濃染像を呈することがあり血管造影では質的診断は困難であると報告している。しかし今回の症例のように既存血管壁の広狭不整像を認めたときには肉腫を考える必要がある。

術前の生検が有用であることは異論のないところである。実際術前に平滑筋肉腫と診断された43症例中37例(86.0%)が術前の生検により診断されていた。また最近の文献<sup>11)</sup>では免疫組織学的手法を用い、直腸に発生する粘膜下腫瘍のうち筋原性腫瘍ではs-100蛋白は陰性であり Desmin, vimentin 染色においては陽性で質的診断も可能と報告しており術前診断の補助となりうる。しかし生検にて平滑筋腫と診断されて摘出標本にて肉腫と診断された症例<sup>12)13)</sup>や、摘出標本にても平滑筋腫と診断された症例のうちに局所再発や肝転移をきたしたという報告<sup>14)15)</sup>もあり生検がすべてではない。Sternberg<sup>16)</sup>は診断基準の中で“Most likely malignant”として強拡大10視野平均5個ないしそれ以上の核分裂像があることとし、“Suggestive of malignancy”として①腫瘍壊死, ②細胞異形, ③腫瘍径が5cm以上を挙げているように本症例を診断するに

あたっては生検による病理組織像にとどまらず画像診断による腫瘍形態像を考慮した総合診断が肝要である。

手術に関しては、腹会陰式直腸切断術, 前方切除, 骨盤内臓器全摘術など癌に準じた手術法が102例(75.6%)を占めており、摘出術または部分切除は25例(18.5%)に施行されていた。術前に平滑筋肉腫と診断された43例中摘出術例はわずか2症例で、あとの41例は平滑筋腫, 粘膜下腫瘍と術前診断された症例あるいは術前診断のなされていない症例であった。Walsh<sup>17)</sup>は発生部位より検討を加え、粘膜筋板より発生したものは小さくて無症状であり、局所の摘出術にて再発症例はなかったが、筋層より発生したものは大きくて症状があり、摘出術をうけた10例のうち6例に再発を認めたと報告している。実際の臨床において術前に粘膜筋板から発生したのか、あるいは筋層から発生したのかを決定することは困難であり平滑筋肉腫と診断されたときには癌に準じた手術が必要であると考える。

以上術前に平滑筋肉腫と診断し、根治術を施行しえた1例を経験し、文献的考察を加えて報告した。本疾患を診断するにあたっては術前の生検に加え画像診断を含めた慎重な検討が必要であり本疾患と診断されたならば癌に準じた手術が施行されるべきであると考えられた。

本論文の要旨は第147回近畿外科学会(平成2年4月14日)において発表した。

#### 文 献

- 1) 岩井 実, 菅谷良男: 直腸に発生せる平滑筋肉腫の1例. 臨病学 3: 159-160, 1955
- 2) 吉田 博, 猪苗代盛貞, 菊池信太郎ほか: 直腸平滑筋肉腫の1例—自験例と本邦報告67例の検討. 日臨外医会誌 44: 144-151, 1983
- 3) 館野哲也, 加藤貴史, 川嶋 昭ほか: 直腸平滑筋肉腫の1例—本邦報告95例の検討. 日臨外医会誌 48: 689-695, 1987
- 4) 林田正文, 松本保和, 緒方弘文ほか: 直腸平滑筋肉腫の1例. 臨と研 64: 543-548, 1987
- 5) 第11回大腸研究会編: 大腸非上皮性腫瘍. 日本大腸肛門病会誌 33: 145-176, 1980
- 6) Evans HL: Smooth muscle tumors of the gastrointestinal tract—A study of 56 cases followed for a minimum of 10 years. Cancer 56: 2242-2250, 1985
- 7) Khalifa AA, Bong WL, Rao VK et al: Leiomyosarcoma of the rectum report of a case and review of the literature. Dis Colon Rectum

- 29 : 427—432, 1986
- 8) Clark RA, Alexander ES : Computed tomography of gastrointestinal leiomyosarcoma. *Gastrointest Radiol* 7 : 127—129, 1982
- 9) Uflacker RR, Amaral NM, Lima S et al : Angiography in primary myomas of the alimentary tract. *Radiology* 139 : 361—369, 1981
- 10) 岡田克彦, 中尾宣夫, 稲本一夫ほか : 血管造影により診断できたS状結腸直腸移行部平滑筋肉腫の1症例. *臨放線* 20 : 1183—1188, 1975
- 11) Saul SH, Rast ML, Brooks JJ : The immunohistochemistry of gastrointestinal stromal tumors. Evidence supporting an origin from smooth muscle. *Am J Surg Pathol* 11 : 464—473, 1987
- 12) 赤嶺晋治, 大江久国, 伊藤重彦ほか : 直腸平滑筋肉腫の1例. *外科* 50 : 952—954, 1988
- 13) 立花 進, 田中千凱, 伊藤隆夫ほか : 10年後に再発し再切除できた直腸平滑筋肉腫の1例. *癌の臨* 35 : 528—532, 1989
- 14) Hanada M, Takami M, Takada T et al : Hepatic metastasis 17 years following resection of low-grade leiomyosarcoma of the rectum. *Acta Pathol Jpn* 35 : 243—249, 1985
- 15) 明石章則, 吉川幸伸, 中村正廣ほか : 平滑筋腫術後4年目にみられた巨大な直腸平滑筋肉腫の1例—本邦10報告例の検討. *日消外会誌* 18 : 1900—1903, 1985
- 16) Cooper HS : *Intestinal Neoplasms*. Edited by Sternberg SS. *Diagnostic Surgical Pathology*. Vol 2. Raven, New York, 1987, p1015—1055
- 17) Walsh TH, Mann CV : Smooth muscle neoplasms of the rectum and anal canal. *Br J Surg* 71 : 597—599, 1984

### A Case Report of a Preoperatively Diagnosed Leiomyosarcoma of the Rectum

Taichi Kanamaru, Ryoichi Kashiwagi, Yoshinari Hashimoto, Atsunori Iso,

Hiroshi Fukuda and Tsutomu Fujimoto

Department of Surgery, Kakogawa Municipal Hospital

A 67-year-old man was admitted to our department with the chief complaint of discomfort in the anus and tenesmus. Abdominoperineal resection of the rectum was performed, and a diagnosis of leiomyosarcoma was made preoperatively. The tumor was 12 × 6 × 6 cm in size, and its cross section showed a gray-white tumor with central necrosis. Microscopically, it consisted of spindle, oval-shaped cells in interlacing fascicles. The mitotic rate was 4.2 mitotic figures per 10 high power fields. In Japan, only 134 cases of leiomyosarcoma of the rectum had been reported up to 1989. Among these, only 43 (31.9%) were diagnosed preoperatively. Radical resection was performed in 102 (75.6%) cases and local resection in 25 (18.5%). Recently, it was stated that the prognosis of leiomyosarcoma is influenced by histopathological features and operative methods. In conclusion, it is important to diagnose this disease not only by microscopic examination of the biopsy specimen but also by medical imaging such as computed tomography, ultrasonography, and angiography. Radical resection should be performed, once the disease is diagnosed.

**Reprint requests:** Taichi Kanamaru Department of Surgery, Kakogawa Municipal Hospital  
384 Yonedacho, Kakogawa, 675 JAPAN