

症例報告

壁外性に発育した食道平滑筋肉腫の1例

小牧市民病院外科

小寺 泰弘 末永 裕之 鈴木 祐一
禰宜田政隆 谷口 健次 稲垣 均
竹下 洋基 金住 直人 余語 弘

比較的まれとされる食道平滑筋肉腫の1例を経験したので報告する。

症例は75歳と本邦報告例中最高齢の男性で、嚥下困難を主訴として来院した。胸部単純写真上、左下肺野から縦隔にかけて腫瘤影を認めたが、上部消化管造影、内視鏡、血管造影、computerized tomography などにて、壁外性に胸腔内に発育した食道の粘膜下腫瘍と診断し、左開胸開腹にて下部食道、胃上部切除術を施行した。術後経過は良好で、術後2年10か月を経た現在再発の徴候を認めない。本疾患は食道癌と比較して、予後は良好とされるが、文献上、食道部分切除が施行された29例中1例、腫瘍摘出術が施行された10例中3例に再発が報告されており、術後長期間にわたっての経過観察が必要である。

Key word: leiomyosarcoma of esophagus

はじめに

食道平滑筋肉腫はまれな疾患である。悪性腫瘍とはいえ、その病態は癌とはやや趣を異にする。術前診断の難しさに加えて、選択すべき手術術式も確立されてはおらず、臨床的にいくつかの問題点を残している。今回、本邦報告例中最高齢と思われる本症を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：75歳，男性。

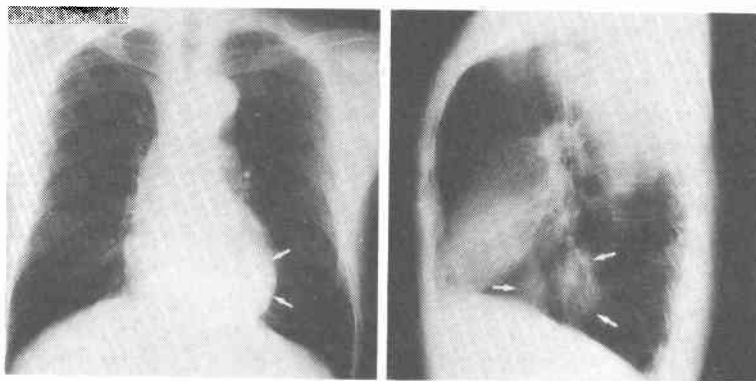
主訴：嚥下困難，血痰。

既往歴：胃潰瘍，珪肺。

家族歴：妹が食道癌で死亡。

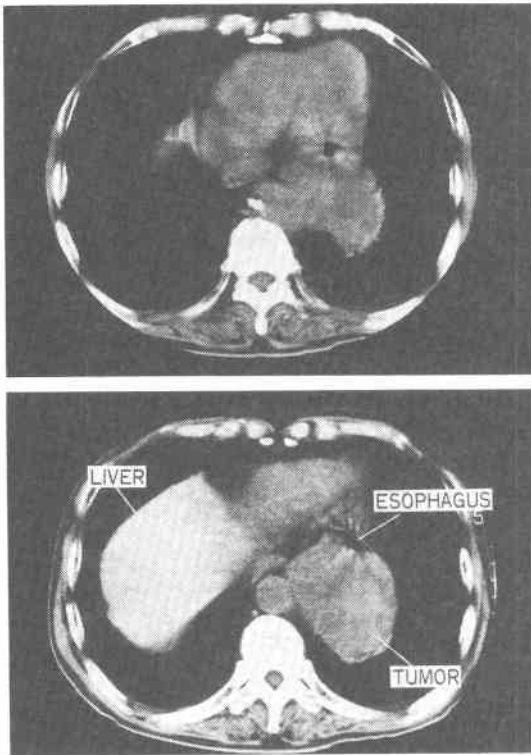
昭和63年2月上記主訴にて当院内科を受診，胸部単純写真上，左下肺野から縦隔にかけて腫瘤影を認め

Fig. 1 Chest roentgenogram. The gross contour of the tumor is shown by the arrows.



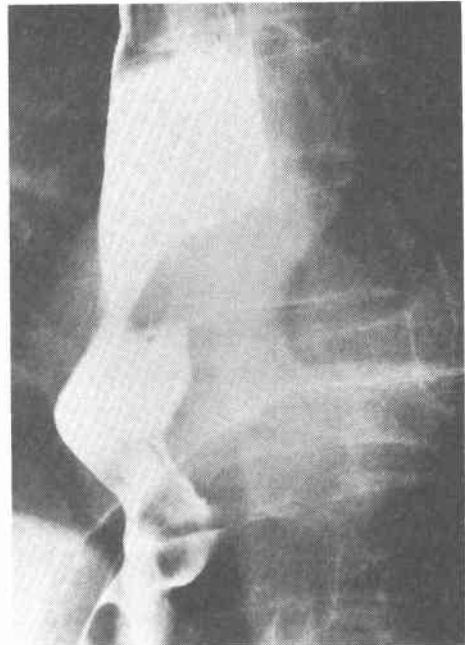
<1991年6月5日受理> 別刷請求先：小寺 泰弘
〒466 名古屋市昭和区鶴舞町65 名古屋大学医学部
第2外科

Fig. 2 The tumor was demonstrated by the computerized tomography as a large mass growing out of the esophageal wall and occupying the posterior mediastinum.



(Fig. 1), 肺腫瘍の疑いで入院となった。血液生化学検査、各種腫瘍マーカーの検索では、特に異常を認めなかった。気管支ファイバーにて異常所見を認めず、肺外疾患の可能性も考えて検索を進めた。胸腹部 computerized tomography では、食道壁と境界不明瞭な巨大な腫瘍が食道を腹側に圧排し、上縁は横隔膜を越え、心臓の背側に達しており (Fig. 2)、むしろ食道胃接合部付近の腫瘍を思わせた。また、肝、リンパ節などへの転移を思わせる所見はなかった。上部消化管透視では、単なる圧排所見ではなく、粘膜病変の存在を疑わせる壁の不整像が下部食道に認められた (Fig. 3)。以上より、壁外性に発育した食道腫瘍と考えた。しかし、狭窄をきたした部分を越えて内視鏡が挿入できなかったため、生検はできなかった。血管造影では、腫瘍は hypervascular であり、左胃動脈の分枝が腫瘍の内部に、下横隔動脈の分枝が腫瘍の周囲に分布していた (Fig. 4)。昭和63年3月11日、斜め胴切り法、左開胸開腹にて下部食道、噴門部切除を施行。腫瘍が左

Fig. 3 Barium esophagram revealed filling defect suggestive of mucosal lesion above the esophagogastric junction.



肺下葉後肺底区に一部浸潤しており、同部を合併切除した。

摘出標本は大きさ6.8×7.5×6.0cm、大部分壁外性に発育しており、粘膜面の隆起の中央には潰瘍を認めたが、この部分を除けば粘膜におおわれており、食道粘膜下腫瘍の所見であった (Fig. 5)。断面は白色で実質性であり、一部に腔を認め、壊死成分と思われる液体の貯留を認めた。病理学的には、細胞分裂像は400倍10視野中3～6個と少ないものの、細胞の異型性を認め、平滑筋肉腫の診断であった (Fig. 6)。下部傍食道、横隔膜リンパ節には転移を認めなかった。患者の術後経過は良好であり、術後2年10か月を経た現在、再発の徴候なく外来通院中である。

考 察

食道平滑筋肉腫は、食道腫瘍の中では比較的にまれな疾患であり、食道悪性腫瘍の0.1～2%を占めるに過ぎない¹⁾といわれている。われわれの検索しえた範囲では自験例を含めて、本邦で59例の報告がある。そのうち男性は38例で、男女比はほぼ2:1と男性に多い。診断時の年齢は25歳から75歳、平均54歳と食道癌より低い傾向を示した。なお、本症例は本邦報告例中最高

Fig. 4 selective arteriogram revealed a hypervascular mass with branches from the left gastric artery occupying within the mass and branches from the subphrenic artery surrounding it.

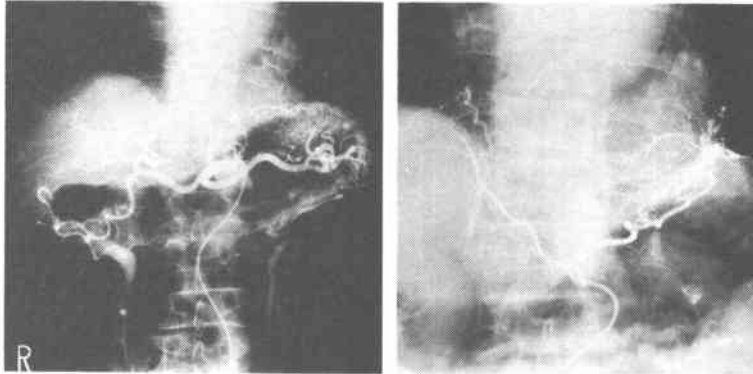


Fig. 5 Surgical specimen: Resected portion of esophagus, unopened (above), and sectioned (below), showing areas of necrosis.

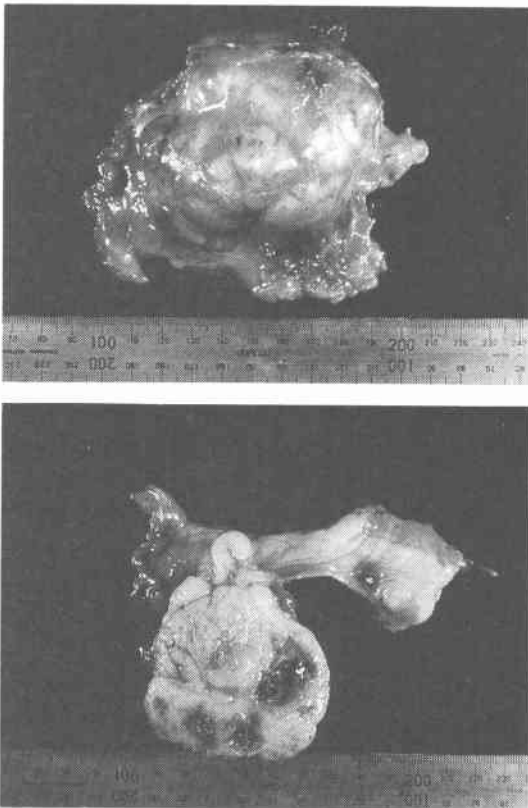
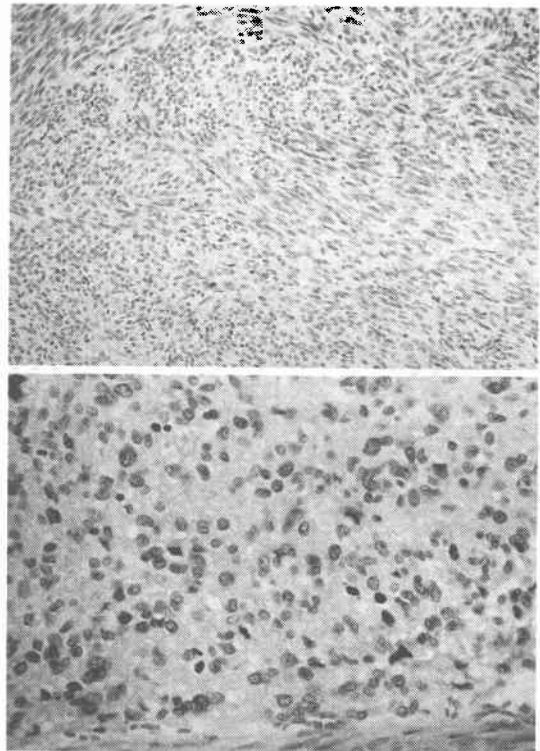


Fig. 6 Low-power view of tumor showing typical interlacing fascicles of spindle-shaped cells (above), and high-power view of areas with more pleomorphism and mitotic figures.



年齢である。発生部位は、上部食道8例、中部食道18例、下部食道29例と、下部に多い。主訴としてはその77%

に嚥下困難がみられた。

本症の予後は食道癌と比べれば良好であり、高度進行例も含めた本邦報告例の集計から算出した1年累積

生存率は82%である。Buxtonは本症を肉眼的にポリリーブ壁と浸潤型に分類し、後者は悪性度が高く、時にリンパ節転移もともない、前者より予後不良と報告している²⁾。たしかに、浸潤型の本邦報告例8例中7例が報告の時点、平均13か月で死亡している。組織学的には、核分裂像の頻度が悪性度の判定に重要視されており、単位視野中の核分裂像の個数で high grade malignancy と low grade に分類する試みはある^{3,4)}が、現在なお統一見解にはいたっていない。

治療法としては、放射線療法が著効をしめた症例も報告されている⁵⁾が、手術療法が主体となる。手術術式としては、占拠部位、食道壁、周囲への浸潤程度などに応じて様々な術式が試みられているのが現状である。切除範囲について検討すると、記載のある45例中29例に、食道部分切除、または下部食道噴門部切除が施行されており、このうち1例に再建胃管への再発がみられる⁶⁾ものの、現時点で最も一般的な術式となっている。一方、10例に腫瘍摘出術が施行されている。すべてが悪性度の低いとされるポリリーブ型であったが、それでも3例に局所再発が報告されており^{7,8)}、この術式の根治性については疑問が残る。これらの10例のうち9例の術前診断は平滑筋腫であり、悪性腫瘍という術前診断がついていないことが、こうした術式が選択された一因と推測される。粘膜下腫瘍であるがゆえに生検が困難である、形態の上では良性腫瘍と鑑別のつかないことが多いなどの理由から、実際に平滑筋肉腫の術前診断は困難であり、縦隔腫瘍と診断されていた4例を除く全例において、食道腫瘍の診断はついていたものの、平滑筋肉腫と診断されていたのは17例であり、全体の37%にすぎない。したがって、こうした食道粘膜下腫瘍の術式を選択するにあたっては、術前診断に最善の努力を注ぐのに加えて、迅速標本を活用した術中診断をも参考にすることが望まれる。一方、胸部食道全摘術にいたった症例は5例報告されており、腫瘍の大きさ、占拠部位等によっては必然的に選択される術式と考えられる。しかし本症と診断されれば一律に食道癌に準じて本術式を行うべきとの考えは、一般的ではない。同様に、リンパ節転移についても、低頻度で認められはするものの、広範な郭清は不要とする意見が多い^{9,10)}。いずれにしても、様々な悪性度のものが存在する本症において、侵襲の大きな術式を画一的にいわゆる標準術式と考えるのは疑問と思われるが、肉眼所見を参考にして、浸潤型など、悪性度の高いと思われるものに対しては、適宜手術を拡大す

る必要があると考えられる。一方、腫瘍摘出術に終わった後で、本症と判明した場合、再手術で病変付近の食道を切除すべきか、経過観察でよいかについても、議論の分かれるところである。悪性度が低ければ経過観察で可とする意見が多い^{11,12)}が、個々の悪性度を定量する方法がない以上、全身状態、年齢など、そのほかの要素も加味して1例ごとに適応と考えざるをえない。いずれにしても、悪性度の低いものは、発育も緩慢であり、局所切除後年余を経て再発している報告があり⁷⁾、術式の根治性、治療方針の妥当性を論ずるのであれば、術後相当長期間にわたって、経過観察した結果を集計して検討する必要がある。

本論文の要旨は第35回日本消化器外科学会総会にて発表した。

文 献

- 1) 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
- 2) Buxton RW: Smooth muscle tumors of the gastrointestinal tract. Ann Surg 26: 666-671, 1960
- 3) 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
- 4) He LJ, Wang BS, Chen CC: Smooth muscle tumors of the digestive tract: Report of 160 cases. Br J Surg 75: 184-186, 1988
- 5) 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. 臨放射 17: 490-498, 1972
- 6) 戸倉康之, 富田壽児, 橋本敏夫ほか: 診断上、興味をしめた巨大食道平滑筋肉腫の1治験例. 外科診療 16: 1101-1106, 1977
- 7) 飯塚紀文, 平田克治, 三富利夫ほか: 食道平滑筋肉腫の切除5年生存例(その特異な経過について). 日消病会誌 67: 270-275, 1970
- 8) 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
- 9) Choh JH, Khazei AH, Ihm HJ: Leiomyosarcoma of the esophagus: Review of the literature and report of 3 cases. Surgery 58: 343-350, 1965
- 10) 島津久明, 小堀鷗一郎, 田野 誠ほか: 食道平滑筋腫と平滑筋肉腫—自験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
- 11) 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. 日臨外会誌 45: 1466-1475, 1984
- 12) 永安 武, 母里正敏, 重松 授ほか: 食道平滑筋肉腫の1例. 臨外 45: 1801-1805, 1990

Leiomyosarcoma of the Esophagus, Report of a Case

Yasuhiro Kodera, Hiroyuki Sunenaga, Yuichi Suzuki, Masataka Negita, Kenji Taniguchi,
Hitoshi Inagaki, Hiroki Takeshita, Naohito Kanazumi and Hiroshi Yogo
Department of Surgery, Komaki Municipal Hospital

A 75-year-old man with dysphagia as the chief complaint was diagnosed as having esophageal leiomyosarcoma. He is the oldest patient with this disease reported in Japan. Esophagectomy was performed, and the patient has been fit and disease-free for nearly 3 years since the operation. Various surgical measures have been selected for this infrequent disease, since the precise preoperative diagnosis has not always been easily obtained, and decision-making during the operation based on the gross findings has often become necessary. Radical excision with extensive lymphadenectomy is not recognized as the standard treatment as in the case of esophageal carcinoma. Local recurrence, however, was observed in one of 29 patients who underwent partial esophagectomy, the treatment most frequently chosen for the 45 cases known, and for 3 out of the 10 patients who underwent simple excision of the tumor alone. No matter what measure is taken, long term follow up is mandatory for patients with this disease.

Reprint requests: Yasuhiro Kodera Second Department of Surgery, Nagoya University, School of Medicine
65 Tsurumai-cho, Nagoya, 466 JAPAN
