

食道胃接合部に発生した平滑筋肉腫の1例

国立病院四国がんセンター外科, 同 病理*

武田 晋平 多幾山 渉 高嶋 成光 万代 光一*

食道胃接合部に生じる平滑筋肉腫はまれで、報告例も多くない。今回われわれは食道胃接合部に生じた平滑筋肉腫の1切除例を経験した。症例は70歳の女性で、嚥下困難を主訴とし、食道胃透視、内視鏡で、下部食道から胃噴門部にかけて粘膜下腫瘍を認め、噴門部では、腫瘤は中央に深い潰瘍を形成し、bridging foldを伴っていた。computed tomography (CT) では下部食道から胃噴門部に連続する9×8×7cmの腫瘤影を認めた。平滑筋肉腫を最も疑い、下部食道噴門切除を施行した。病理組織学的検査では、平滑筋肉腫と診断された。リンパ節ではいわゆる1群リンパ節に転移を認めた。術後6か月目に肝転移を認め、現在再入院中である。平滑筋肉腫は血行性転移、腹膜播種が多く、リンパ節転移はまれとされ、局所切除も検討されているが、自験例のように大きな腫瘤を形成する症例に対しては進行胃癌に準じたリンパ節廓清、化学療法が必要と思われる。

Key words: leiomyosarcoma at the esophagogastric junction, lymph node metastasis of leiomyosarcoma, liver metastasis of leiomyosarcoma

I. はじめに

食道胃接合部に生じる平滑筋肉腫はまれで、報告例も多くない。今回われわれは下部食道噴門部に生じた平滑筋肉腫の1切除例を経験したので若干の文献的考察を加え、報告する。

II. 症 例

患者：70歳、女性。

主訴：嚥下困難。

既往歴：60歳より高血圧。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成元年4月ごろより食事が飲み込みにくくなったが、嘔吐すると楽になるため放置していた。平成2年3月初めより、嚥下困難が増強し食べられなくなったため、近医を受診。下部食道癌と診断され、3月12日当院紹介、入院となった。1年間で約15kgの体重減少をきたしていた。

入院時現症：栄養状態は中等度。心肺に異常を認めず、体表リンパ節は触知されなかった。腹部は平坦軟であるが、心窩部に鶏卵大の硬い腫瘤を触知し、可動性はなかった。

一般検査所見：血液一般、生化学検査に異常を認めず、各種腫瘍マーカーも正常範囲内であった。肺機能

は%肺活量74.8%、一秒率67.4%と軽度の混合性肺機能障害を認めた。

胸部X線写真所見：肺野では、左肺尖部に数個の粒状影を認め、古い結核性病変と思われた。縦隔では右第2弓後側方に突出する径6cm大の腫瘤陰影を認めた。腫瘤の境界は明瞭で、平滑であった (Fig. 1)。

食道胃透視所見：下部食道は左後方より粘膜下腫瘍様に食道内腔に突出した腫瘤によって著明に前方に圧排され、同部で狭窄をきたしていた。腫瘤の表面は、平滑で境界は不明瞭であった。腫瘤の下端部は胃噴門部にあり、bridging foldを伴い、中央に深い潰瘍を形成していた (Fig. 2a, b)。

食道胃内視鏡所見：門歯列より33cmの下部食道に左後壁から内腔に突出する硬い腫瘤を認め、食道は著明に狭窄し、口側には食物残渣を多量に認めた。腫瘤はなだらかに立ち上がり、表面は正常粘膜に覆われていたが、一部にびらんを認め、境界は比較的明瞭であった (Fig. 3a)。胃噴門部の前壁から大弯にかけ bridging foldを伴った粘膜下腫瘍の隆起を認め、中央部に深い潰瘍を形成していた (Fig. 3b)。潰瘍周から生検を行ったが、壊死組織と再生上皮を認めたただけであった。

胸腹部 computed tomography (CT) 所見：下部縦隔から上腹部にかけ9×8×7cm大の境界比較的明瞭な腫瘤影を認めた。腫瘤は下部食道から胃噴門部に連

Fig. 1 Chest X-ray showed the mass lesion with a size of about 6cm in the postmediastinum.



Fig. 2 Barium examination of the esophagus and stomach showed the severe stenosis of the lower esophagus with the submucosal tumor at the esophagogastric junction.

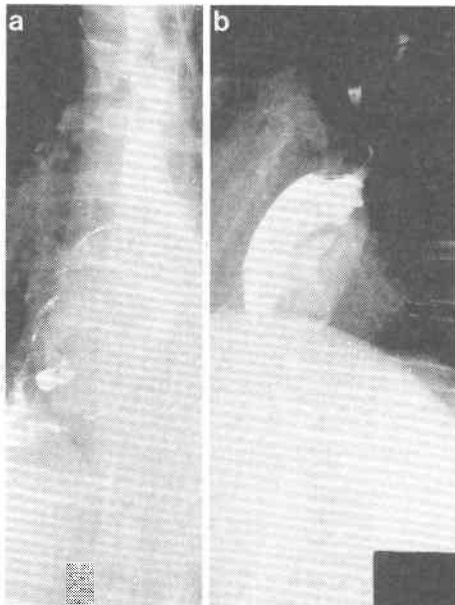
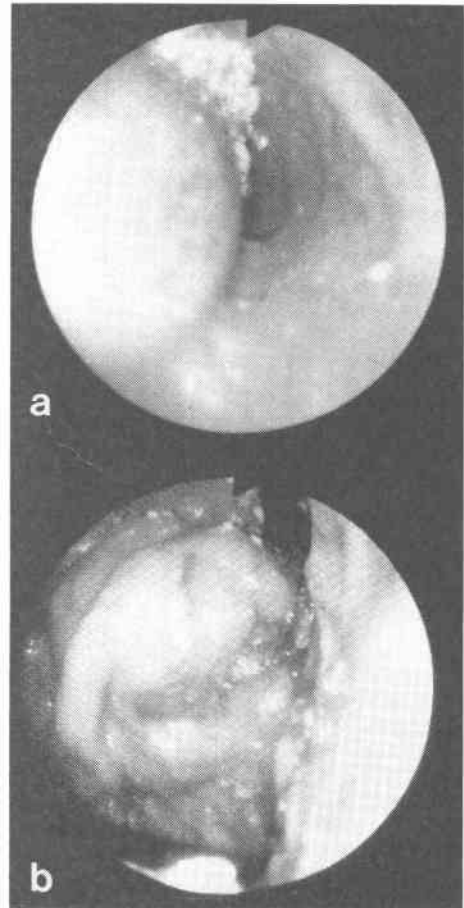


Fig. 3 Endoscopic examination of the esophagus and the stomach showed the submucosal tumor in the lower esophagus, extending to the cardia, with bridging fold and ulceration.



続しており、内部に低吸収領域を認めた。周囲臓器は腫瘍によって圧排され、一部では境界不明瞭となっていた (Fig. 4a, b)。

ガリウムシンチ所見：下部食道から噴門部にかけて腫瘍に一致した異常集積像を認めた。内部には集積の欠損部を伴っており、壊死に陥っている部分があるものと思われた (Fig. 5a, b)。

以上より下部食道から噴門部におよぶ粘膜下腫瘍、特に平滑筋肉腫を最も疑った。

手術術式および所見：平成2年3月26日上腹部正中切開、胸骨縦切開にて開腹。腹膜播種、肝転移は認めなかった。腫瘍は食道裂孔を中心に下部食道から噴門部にかけて手拳大のものを触知した。腫瘍は圧排性に

Fig. 4 Abdominal CT revealed an irregular-shaped tumor (9×8×7cm) at the esophagogastric junction, with some low density areas.

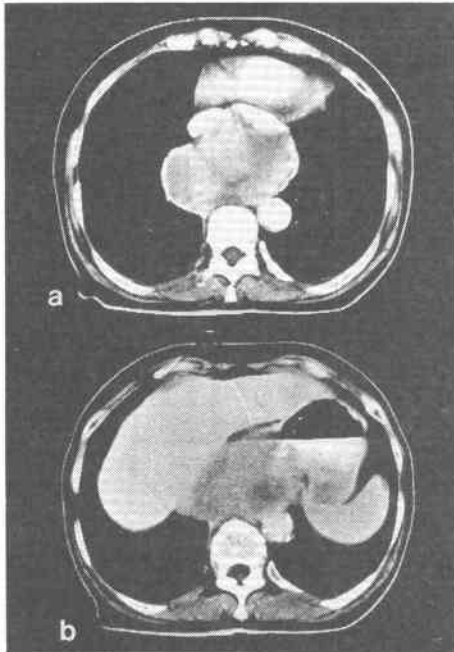


Fig. 5 Gallium scintigram showed an abnormal positive shadow with intratumorous defect, corresponding to the tumor size.

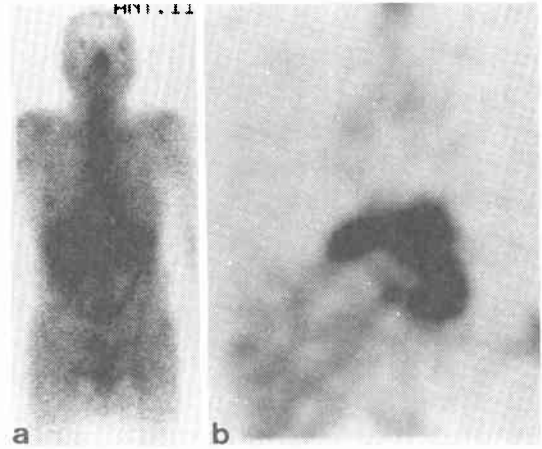
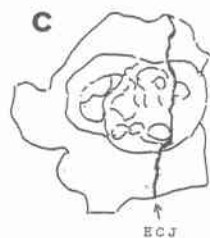
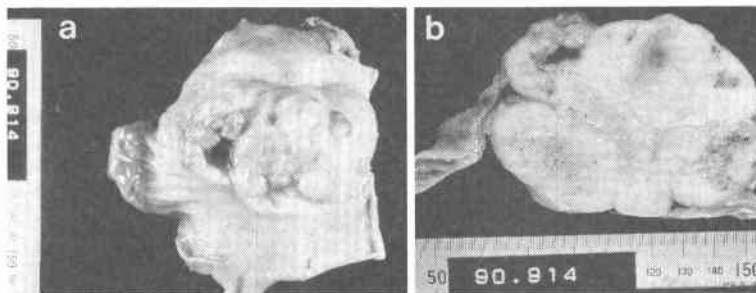


Fig. 6 Macroscopic findings of the operative specimen. The large submucosal tumor was presented at the esophagogastric junction with the large ulceration. There was the necrotic area and bleeding in the cross section of the tumor. Scheme of the operative specimen.



増殖し，周辺臓器とは線維性に癒着していたが，剝離は比較的容易であった．下部食道噴門切除を施行し，再建は食道胃管吻合（端側）を行った．

切除標本の肉眼所見：食道胃接合部を中心とし，11×9.5×5cmの巨大な粘膜下腫瘍を認めた．腫瘍表面の粘膜は一部脱落し，腫瘍が露出していた．噴門部

には1.5×1.5cmの深い潰瘍を形成していた(Fig. 6a)。腫瘍剖面は白色分葉状ないしは渦巻状で部分的に粘液腫状変性や出血を呈していた(Fig. 6b)。

病理組織学的所見：腫瘍細胞は両端鈍の紡錘型異型核と辺縁不明瞭な好酸性細胞質を有し、束をなして種々の方向に錯綜しつつ増生していた(Fig. 7a)。腫瘍細胞には核周囲 halo や細胞質内空胞形成も見られた。部分的には平滑筋芽細胞腫様の形態を示していた。腫瘍は食道胃境界部の固有筋層を中心に発育し、粘膜下組織および漿膜下組織に浸潤していた。細胞密度は増加し、核の大小不同や多数の核分裂像(高倍10視野に3~4個)が認められ(Fig. 7b)、平滑筋肉腫と診断した。リンパ管および血管侵襲像も観察された。また、廓清リンパ節のうち右噴門リンパ節に腫瘍転移を認めた。

術後経過：合併症なく順調に経過し、術後34日目に軽快退院した。術後6か月の外来受診時に行った腹部超音波およびCT検査にて肝左葉外側区域に2cm大、1cm大の2個の肝転移を認めた。現在再入院し、加療中である。

III. 考 察

消化管の平滑筋肉腫の発生頻度は癌、悪性リンパ腫に次いで高く、悪性腫瘍の0.5~1.0%を占めている¹⁾。Andersonら²⁾によると、発生部位としては胃が最も多く、ついで小腸、直腸、結腸の順に多く、食道は非常にまれとされている。食道平滑筋肉腫は久礼ら(1986)³⁾によると本邦における報告例は50例のみで、その好発部位は中下部食道に多いとされ、食道の解剖

学的特性に一致している。また、胃平滑筋肉腫の好発部位は噴門、胃体上部に発生することが多いと報告されている⁴⁾⁵⁾。しかしながら、食道胃接合部に発生した平滑筋肉腫は症例報告⁶⁾⁷⁾が散見されるのみで、同部における発生はまれであるといえる。

本腫瘍のX線診断は腫瘍の辺縁部では粘膜下腫瘍の特徴を残しており、正常粘膜からなだらかに移行し、bridging foldを伴い、腫瘍表面は大小不整な蜂窩状を示し、癌と異なり壁の伸展性は比較的良好に保たれる。また、内視鏡生検による診断は困難なことが多く、平滑筋肉腫の確診を得たものは少ない¹⁾。本症例の術前診断は、下部食道噴門部の粘膜下腫瘍であり、腫瘍径がCT上で9cmと大きく、腫瘍は硬く、深い潰瘍形成が認められること、CT、ガリウムシンチで内部に壊死に陥った部分があることなどから平滑筋肉腫と診断した。

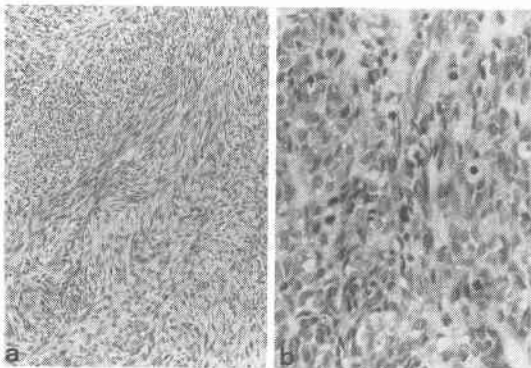
手術は術前診断では境界比較的良好な限局性の腫瘍であり、術中所見では、腫瘍は漿膜面に露出しておらず周囲組織への浸潤はなく、肉眼的にリンパ節転移を認めなかったことから下部食道噴門切除、およびいわゆる1群リンパ節の郭清を併せて行った。

本腫瘍の病理組織学的な特徴は、紡錘形の平滑筋細胞に類似した腫瘍細胞が種々の方向に錯綜しながら増殖、細胞密度の増加、核の大小不同および核分裂像を認め、周囲に浸潤する傾向があることである⁸⁾⁹⁾。本症例も同様の所見を有し、平滑筋肉腫と診断した。本症例では腫瘍は胃固有筋層を中心に発育しており、胃噴門部から発生した平滑筋肉腫が、食道固有筋層に浸潤性に増殖したものと考えたが、食道胃境界部に発生した平滑筋肉腫の起源を決定することは病理組織学的にも困難と思われる。

胃平滑筋肉腫の悪性度、予後因子としては、腫瘍の発生部位、腫瘍の大きさ、潰瘍形成の有無および核分裂像の頻度などが従来から報告されている¹⁰⁾。Shiuら⁹⁾は、腫瘍の大きさ、核分裂像、周囲臓器への浸潤から胃平滑筋肉腫を0~II期に分類しており、本症例はstage IIに分類される。

平滑筋肉腫の転移は血行性転移、腹膜播種が多く、リンパ節転移は少なく、その頻度は0~20%と報告されている¹¹⁾¹²⁾。本症例はいわゆる1群リンパ節に転移が認められ、術後6か月目に肝転移を認めた。腫瘍径が5cm以下の胃平滑筋肉腫は、胃切除、局所切除いずれでも術後の生存率に変わりがないとする報告¹⁰⁾¹¹⁾もあるが、少数ながらもリンパ節転移が認められること

Fig. 7 Histological findings showed the tightly packed nests of poorly differentiated neoplastic spindle cells (H & E. ×150). There are many mitotic figures (H & E. ×400).



から、本症例のように大きな腫瘍を形成する症例に対しては進行胃癌に準じたリンパ節廓清が必要と思われる。一方、肝転移症例の予後は不良とされているが^{11,8)}、最近では肝動脈塞栓術 (TAE) が奏効したとする報告例^{12,13)}もみられ、本症例でも抗癌剤の全身投与、TAEなどを検討している。

文 献

- 1) 津森孝生, 仲尾量保, 宮田正彦ほか: 消化管平滑筋肉腫 12 例の臨床病理学的検討. 日消外会誌 19: 779-783, 1986
- 2) Gerald Fise, cham K, MA: Alimentary Tract. Anderson WAD. Pathology. ath. ed. The CV Mosby Co, St Louis, 1990, p1153-1198
- 3) 久杵三子雄, 近藤雄二, 山本博徳ほか: 食道平滑筋肉腫の 1 例. 高知中病医誌 13: 91-97, 1986
- 4) 佐野量造, 広田映五, 下田忠和ほか: 胃肉腫の病理. 胃と腸 5: 311-322, 1970
- 5) 貞広荘太郎, 木村敏郎, 清水壮一ほか: 胃平滑筋肉腫の 4 例. 日臨外医会誌 50: 1171-1175, 1989
- 6) 山本 勇, 今成晴代, 塚田隆憲ほか: S 状結腸早期癌を合併した食道噴門接合部平滑筋肉腫の 1 例. Prog Dig Endosc 11: 208-211, 1977

- 7) 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: 1466-1475, 1984
- 8) 武市 卓: 消化管平滑筋肉腫 58 例の臨床病理学的研究. 四国医誌 31: 179-192, 1975
- 9) Shiu MH, Farr GH, Papachristou DN et al: Myosarcmas of the stomach—natural history, prognotic factors and management—. Cancer 49: 177-187, 1982
- 10) 北岡久三, 岡林謙蔵, 木下 平ほか: 胃平滑筋肉腫の予後因子と手術法—とくに局所切除の適応について—. 癌の臨 29: 811-816, 1983
- 11) 笹子三津留, 木下 平, 丸山圭一ほか: 胃平滑筋肉腫 51 切除例からみた切除術式の検討. 日消外会誌 22: 2212-2216, 1989
- 12) 平野 誠, 川浦幸光, 森 善裕ほか: 転移性平滑筋肉腫に対して経カテーテル肝動脈塞栓術後肝中央七区域切除を行った 1 治験例. 日消外会誌 16: 1820-1823, 1983
- 13) 奥隅淳一, 咲田雅一, 土井正樹ほか: 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

A Case Report of Leiomyosarcoma Developing at the Esophagogastric Junction

Shinpei Takeda, Wataru Takiyama, Shigemitsu Takashima and Kouichi Mandai*
Department of Surgery and Histology*, Shikoku Cancer Center

A rare case of leiomyosarcoma arising at the esophagogastric junction is reported. A 70-year-old woman presented with dysphagia. A barium examination of the upper gastrointestinal tract showed a large (about 10 cm) submucosal tumor at the esophagogastric junction. An endoscopic examination revealed a submucosal tumor with bridging folds and ulceration extending from the lower esophagus to the cardia. Histological examination of the biopsied specimen showed simple necrotic tissue without malignancy. By CT an irregular-shaped tumor (9×8×7 cm) was found with some low density areas. An esophagogastric resection was carried out. Macroscopic examination of the surgical specimen revealed a submucosal tumor with pronounced ulceration and necrosis. Histological examination showed spindle shaped dense proliferation of anaplastic tumor cells with many mitotic figures to form tightly packed tumor cell nests, diagnosed as leiomyosarcoma. Metastatic foci were histologically found in the regional lymph nodes. A follow-up 6 months after the operation disclosed hepatic metastasis and the patient has been treated with chemotherapy. We suggest that dissection of the primary lesion with removal of regional lymph nodes and appropriate chemotherapy would be the best therapeutic modality for advanced leiomyosarcoma of the digestive tract.

Reprint requests: Shinpei Takeda Department of Surgery, Shikoku Cancer Center
13 Horinouchi, Matsuyama, 790 JAPAN