

血清 ferritin 値が高値を示した胃平滑筋肉腫の1例

旭川医科大学第2外科

加藤 一哉 小野寺一彦 草野 満夫
松田 年 西田 靖仙 水戸 廻郎

胃平滑筋肉腫の発生頻度は、胃悪性腫瘍の1~3%とされまれな疾患である。今回われわれは胃壁外に巨大嚢胞性増殖を呈しかつ血清 ferritin 値が高値を示し、他の腹腔内嚢胞性病変と鑑別が困難であった症例を経験したので報告する。症例は、38歳男性で主訴は上腹部腫瘤、理学的所見では、25cm×15cmの表面平滑な波動を有する腫瘤を触知した。胃X線造影、胃内視鏡検査にて胃体上部に中心性陥凹を有する粘膜下腫瘤を認め、腹部CT、超音波検査で隔壁を有する巨大嚢胞として描出された。選択的左胃動脈造影では、胃体上部の胃粘膜下腫瘍に一致して腫瘍血管の増生を認めた。また血液検査では、血清 ferritin 値が307ng/mlと高値を示した。以上より、胃壁外に嚢胞状増殖をした胃粘膜下腫瘍と診断し手術を施行した。病理学的検査では悪性度の高い平滑筋肉腫と診断され、胃外発育部分(嚢胞)に連続性を有し、中心性壊死により巨大嚢胞を形成したと考えられた。

Key words: leiomyosarcoma of stomach, large cystic lesion, ferritin

はじめに

胃原発の胃悪性腫瘍に対する胃肉腫の発生頻度は1.0~3.0%¹⁾でありまれな疾病とされる。今回われわれは胃壁外に巨大な嚢胞性増殖を呈し、また血清 ferritin 値が異常高値を示し他の腹腔内嚢胞性疾患と鑑別が困難であった症例を経験したので報告する。

症 例

患者: 38歳, 男性。

主訴: 上腹部腫瘤。

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 数年前より上腹部膨満を自覚するも放置していた。昭和63年3月に下痢, 上腹部痛, 発熱のため近医受診, 上腹部腫瘤を指摘され精査目的にて当科入院となった。

入院時現症: 身長161cm, 体重69kg, 腹部所見では左上腹部に約25cm×15cmの表面平滑で辺縁明瞭, 可動性のない波動を伴った腫瘤を触知した。

入院時検査所見: 血液検査にて貧血なく, 白血球, 血小板も正常であり, 生化学的検査でも異常を認めなかった。血沈は1時間値84mm, 2時間値120mmと著明に亢進し, 腫瘍マーカーは carcinoembolic antigen

Table 1 Laboratory data on admission

Blood analysis				
RBC	408×10 ⁴ /mm ³	GOT	37 IU/l	
WBC	6300 /mm ³	γ-GTP	154 IU/l	
Hb	11.8 g/dl	T-cho	199 mg/dl	
Ht	36.6 %	LDH	450 IU/l	
Plt	41.6×10 ⁴ /mm ³	BUN	16 mg/dl	
Biochemistry			Cre	1.1 mg/dl
T.P	6.7 g/dl	Na	139 mEq/l	
A/B	3.6 g/dl	K	4.3 mEq/l	
A/G	1.16	Tumor marker		
TTT	0.4 KU	CEA	1 ng/ml	
ZTT	2.8 KU	AFP	5 ng/ml	
T.B	0.4 mg/dl	CA 19-9	8.0 U/ml	
ALP	628 IU/l	Ferritin		
GPT	50 IU/l	(95.7±40 ng/ml)		
307.8 ng/ml				

(CEA), alfa fetoprotein (AFP) とともに正常範囲であったが, ferritin 値が307.8ng/ml(正常: 95.7±40.1 ng/ml)と異常高値を示した (Table 1)。

胃X線造影所見: 胃は, 前方に著明に圧排変形され, 体上部後壁に中心性陥凹を伴う直径3cmの隆起性病変を認めた (Fig. 1)。

胃内視鏡所見: 胃透視所見と同様に胃体上部後壁に中心性潰瘍を持ち bridging fold を伴う直径3cmの隆起性病変が認められ, 胃粘膜下腫瘍の存在が示唆され

<1991年12月10日受理>別刷請求先: 加藤 一哉
〒078 旭川市西神楽4線5号 旭川医科大学第2外科

Fig. 1 Upper gastrointestinal x-ray: Stomach was pressed to the anterior side. There was the tumor in the fundus (→).

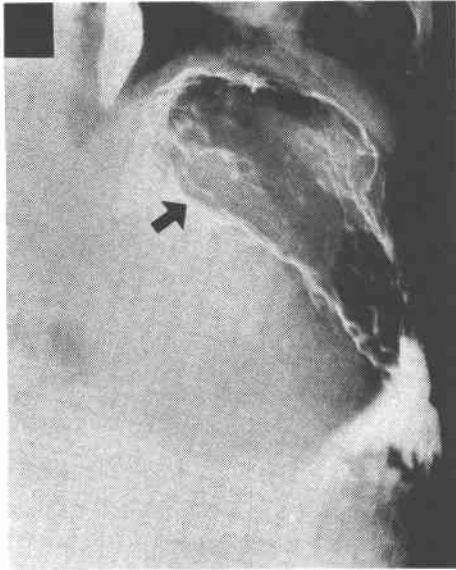


Fig. 2 Endoscopic view of stomach: The tumor surface was covered with mucosa except small ulcer, and also bridging fold was seen.

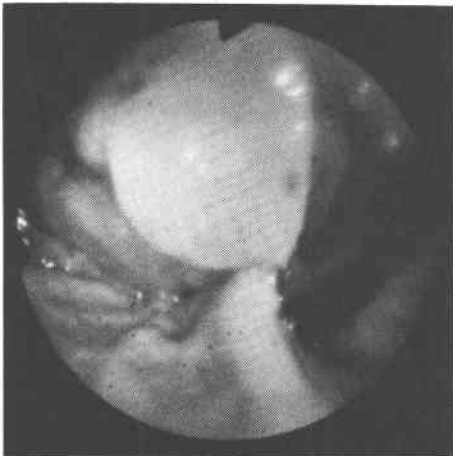
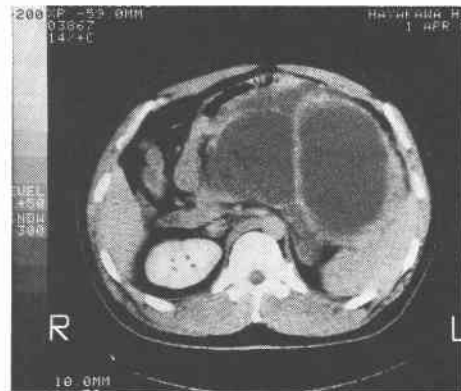


Fig. 3 Ultrasound picture: The tumor was recognized as a large separated cystic mass.



Fig. 4 CT scan of tumor showing a large separated cystic mass.



た (Fig. 2).

超音波検査所見：腹部腫瘍は左上腹部から臍下部に及び、かつ正中を超え、かつ内腔に隔壁を持つ cystic lesion として描出された。Cyst の内腔には充実性腫瘍の存在を示唆するものはなかった (Fig. 3).

腹部 computerized tomography (CT) 検査所見：腹部腫瘍は左横隔膜下から腹部中央を占拠し、その大

きさは最大径25cm×20cmで隔壁を伴った嚢胞性病変であった。また肝、脾とは明瞭に境界されるも、胃および脾との境界は不明瞭であった (Fig. 4).

腹部血管造影検査所見：腹部大動脈造影では異常血管は認められず、超選択的左胃動脈造影にて胃小弯アーケードの圧排および噴門後枝に一致して腫瘍血管の増生が認められた。また胃体上部枝は腫瘍辺縁に沿って伸展されていた (Fig. 5).

以上より壁外性に巨大嚢胞性発育を呈した胃粘膜下腫瘍の疑いの術前診断のもとに手術を施行した。

手術所見：平成元年3月3日上腹部正中切開にて開腹した。腹水、肝転移、腹膜播種などは認められなかった。腫瘍は比較的厚い壁をもち、波動を有し、胃を前上方に著明に圧排し、かつ胃の漿膜に高度の繊維性癒着を認めた。腫瘍は胃壁から体上部後壁の粘膜下腫瘍

Fig. 5 Selective left gastric angiogram, Arterial phase: Several tumor vessels were seen in the fundus (→).

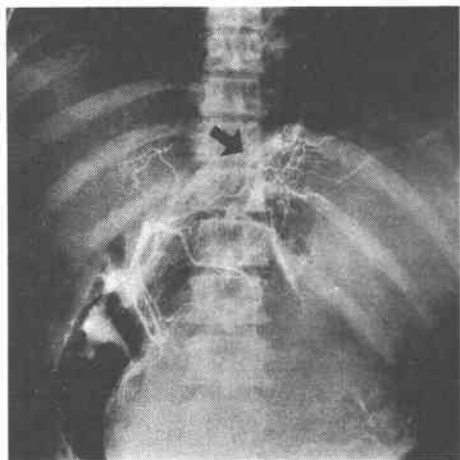
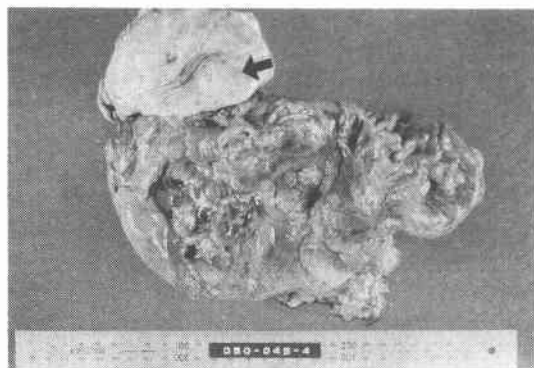
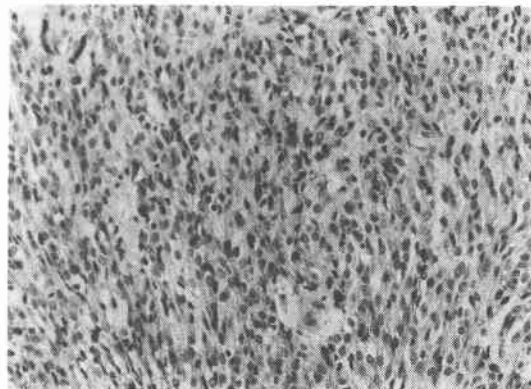


Fig. 6 Resected specimen demonstrates the sub-mucosal tumor (→) connecting with extragastric large cystic mass



部で腫瘍壁との連続性をもつ部分を除き、鈍的に剝離可能であった。また肝、脾、膵との連続性は認められなかった。胃粘膜下腫瘍は嚢胞性病変とともに胃局所切除にて摘出された。胃所属リンパ節などの腫脹は認められなかった。摘出標本は25×12×10cmで重量は2,450gであった。嚢胞壁の一部は明らかに胃粘膜下腫瘍部分と繊維性連続を有しており、嚢胞壁は腫瘍性に肥厚している部分と、繊維性の部分とが混在していた(**Fig. 6**)。嚢胞内溶液の性状は褐色、粘調で全量1,800mlで、嚢胞液中の細胞成分は変性壊死細胞のみであったが、生化学的検査では、ferritin 値が22,800ng/mlと著明な高値を示した。

Fig. 7 Microscopic findings: The pleomorphic cells have abundant cytoplasm, mitoses and have variably large, hyperchromatic nuclei (H.E. × 200)



病理学的所見：短紡錘形から紡錘形の束状配列を示す細胞増殖像が認められ、その細胞質はMasson染色に赤染し平滑筋肉腫と診断された。核分裂像は倍率200倍にて1視野に2～3個認められ、かなり悪性度の高い平滑筋肉腫と診断された(**Fig. 7**)。またサンプリングされた胃癌取扱い規約²⁾における1群のリンパ節には転移は認められなかった。一方嚢胞状発育部分の肥厚した部分の病理学的検索でも、分裂像が胃粘膜下腫瘍部分のそれと同様に認められ組織学的悪性度は同程度であった。

考 察

非上皮性悪性腫瘍は、上皮性腫瘍に比べ発生頻度が低く、消化器における発生部位は、胃、小腸、直腸の順に多いとされている³⁾。胃に原発する非上皮性悪性腫瘍の頻度は、全胃悪性腫瘍の0.5%～3.5%とされており¹⁴⁾、その発育形式は、Skandalakisら⁵⁾の分類に従って胃内型、壁内型、胃外型および混合型に分類される。また潰瘍形成の有無については、胃内型が胃外型に比べ多いとされる。腫瘍径については、胃外発育型は一般にその症状発現が遅いために巨大化する傾向にあるとされるが⁹⁾、本症例の場合には、発育型は混合型であり、胃外部分の大きさは胃内部分の約10倍に達しており、かつ嚢胞の形態を呈していた。嚢胞壁の一部は腫瘍性に肥厚した部分があり、その部分で胃内発育部分に連続していた。この嚢胞状形態は、長期に渡る経過中に広範な中心性壊死によって形成されたとも推定できた。一般に平滑筋芽腫は嚢胞状発育が多いが⁷⁾、本症例のような巨大化したものは平滑筋肉腫で

はまれと考えられる。一方、本症の悪性度を判定するために Stout⁹⁾は、200倍の視野を無選択的に10視野を検鏡し悪性度を4段階に分けているが、本症例では、嚢胞壁(胃外発育部)も胃内発育部と同様に核異型が強かつ細胞密度も高く、核分裂像も多く最も悪性度が高い胃平滑筋肉腫と診断された。一方、手術術式に関しては、血行性転移が主であり、リンパ節転移がまれであることから局所切除で十分であるという報告⁹⁾¹⁰⁾と、リンパ節転移例も存在することから胃癌に準じた郭清を含む胃切除術が必要という報告¹¹⁾¹²⁾とがあり確立された術式はない。しかしながら胃切除の範囲と術後生存率との間の相関関係を認めないとの報告¹³⁾も散見され、局所手術が適切な治療法として認められつつある¹⁴⁾。本症例は、巨大嚢胞性増殖を呈した胃外発育部分でも周囲臓器への浸潤なく圧排と繊維性の癒着のみであり、サンプリングした周囲のリンパ節の腫大もなく、胃局所切除にて摘出することで十分と考えられた。また腫瘍マーカーのひとつである ferritin が血中および嚢胞内容液中で非常な高値を示し、このことは今まで報告例がない。最近癌疾患で血清 ferritin が上昇することが注目され、tumor marker としての意義が検討されている。肝、脾、子宮、副腎、乳腺などの臓器に発生する癌および肝をはじめ広範な転移例では、高値を示すとされている¹⁵⁾¹⁶⁾。また新津ら⁹⁾は、人癌移植ヌードマウスにて各種の人癌組織(血清 ferritin 値が低い胃癌組織も含め)が直接 ferritin を産生することを示しており、腫瘍 ferritin は carcinofetoplacental isoferritin であり¹⁷⁾、AFP 産生と類似した機序が考えられている¹⁸⁾。すなわち悪性腫瘍における血清 ferritin の上昇の機序としては、1. 腫瘍細胞からの酸性イソフェリチンの産生、2. 腫瘍細胞の浸潤転移による組織破壊、3. 悪性腫瘍患者にみられる貧血ともなう網内系への鉄貯蔵の増大が考えられるが、今回われわれの経験した症例は、腫瘍嚢胞内液が高 ferritin 値を示したことより腫瘍細胞からの産生の機序が最も考えられた。

文 献

- 1) Marshall SF, Meissner WA: Sarcoma of the stomach. *Ann Surg* 131: 824-837, 1950
- 2) 胃癌研究会編: 外科・病理。胃癌取扱い規約。第11

- 版。金原出版、東京、1985
- 3) Anderson PA, Dockerty MB, Buie LB et al: Myomatous tumor of the rectum (leiomyomas and myosarcomas). *Surgery* 28: 642-650, 1950
 - 4) 大井 実, 三穂乙実, 伊藤 保ほか: 非癌性腫瘍。外科 29: 112-133, 1967
 - 5) Skandalakis JE, Gray SW, Shepard D: Smooth muscle tumors of the stomach. *Surg Gynecol Obstet* 110: 209-226, 1960
 - 6) 高木國夫, 山本英昭: 胃腸管平滑筋肉腫—50例の臨床的特徴について—。消外 5: 1507-1513, 1982
 - 7) Lumb G: Smooth muscle tumor of the gastrointestinal tract and retroperitoneal tissues presenting as large cystic mass. *J Pathol Bacteriol* 63: 139-147, 1960
 - 8) Stout AP: Leiomyosarcoma of the superficial soft tissue. *Cancer* 11: 844-854, 1958
 - 9) Appleman HD, Helwig EB: Gastric epithelioid leiomyoma and leiomyosarcoma. *Cancer* 38: 708-728, 1976
 - 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。癌の臨 29: 811-816, 1983
 - 11) 中野 博, 成沢富男, 早川 勝ほか: 原発性胃肉腫18例の検討。外科 32: 935-941, 1970
 - 12) 三浦敏夫, 猪野睦征, 清水輝久ほか: 外胃型平滑筋肉腫。外科治療 39: 121-127, 1978
 - 13) 黒田吉隆, 辻 政彦, 杉井 衛ほか: 原発性胃平滑筋肉腫11例の臨床病理学的検討。消外 5: 1507-1513, 1982
 - 14) 岸川博隆, 片山良彦, 山田 健ほか: 胃平滑筋肉腫20例の臨床的検討。消外 10: 1865-1868, 1987
 - 15) Niitsu Y, Kohgo Y, Yokota M et al: Radioimmunoassay of serum ferritin in patients with malignancy. *Ann NY Acad Sci* 259: 450-452, 1975
 - 16) Marcus DM, Zinberg N: Isolation of ferritin from human mammary and pancreatic carcinoma by means of antibody immuno adsorbents. *Arch Biochem Biophys* 162: 493-501, 1974
 - 17) 漆崎一郎: 血液学における ferritin の意義。日血会誌 39: 571-583, 1976
 - 18) Kew MC, Torrdnce ID, Derman D et al: Serum and tumor ferritin in priamry liver cancer. *Gut* 19: 294-299, 1978

A Case Report of Gastric Leiomyosarcoma with a High Value of Serum Ferritin

Kazuya Kato, Kazuhiko Onodera, Mitsuo Kusano, Minoru Matsuda, Yasuhiro Nishida and Michio Mito
Second Department of Surgery, Asahikawa Medical College

Leiomyosarcoma of the stomach are infrequently encountered tumors. They represent 1 to 3 percent of all gastric neoplasmas, and despite advances in endoscopy and computerized tomography, early diagnosis is rarely accomplished. A 38-year-old man presented with an upper abdominal tumor. Physical examination at admission showed that the tumor had a smooth surface and exhibited fluctuation. In upper gastrointestinal tract study (barium, endoscopy) revealed submucosal tumor with ulceration in the fundus. Computerized tomography and ultrasonography revealed a large cystic lesion with septums, compressing the stomach and pancreas. Left gastric angiography showed a moderate number of tumor vessels through out the lesion in the fundus. The serum ferritin level revealed 307 ng/ml, which is very high. When the abdominal cavity was opened cystic lesion measuring approximately 25 cm in diameter was seen to protrude from the submucosal tumor in the fundus. The pathological diagnosis was leiomyosarcoma of the stomach with giant cyst formation. The ferritin level of the fluid in the cyst was 22800 ng/ml.

Reprint requests: Kazuya Kato Second Department of Surgery, Asahikawa Medical College
4-5 Nishi-Kagura, Asahikawa, 078 JAPAN
