

症例報告

粘膜関連リンパ組織の過形成による食道粘膜下腫瘍の1例

鳥取大学医学部第1外科

中村 泰啓 前田 迪郎 貝原 信明

症例は57歳の男性。胃検診にて胸部上部食道に隆起性病変を指摘され当科を紹介された。X線造影検査、内視鏡検査、CTなどの所見から良性の食道粘膜下腫瘍が考えられ、経頸部的に非開胸で腫瘍摘出を行った。腫瘍は大きさ2.8×1.5×1.5cmで被膜を有さない弾性硬なものであった。術後の病理学的検索にて、悪性リンパ腫などとの鑑別を要したが、粘膜関連リンパ組織 (mucosa-associated lymphoid tissue) の増殖により腫瘍を形成したと考えられる極めてまれな食道粘膜下腫瘍であった。今後、食道に限らず消化管の粘膜下腫瘍の鑑別診断に際して考慮すべきものであると考えられ、若干の文献的考察を加えて報告した。

Key words: submucosal tumor of the esophagus, mucosa-associated lymphoid tissue, benign lymphoid hyperplasia

はじめに

食道粘膜下腫瘍は比較的まれな疾患で、そのほとんどが平滑筋腫で占められ、その他は少数である。今回われわれは、上部食道の粘膜下腫瘍を経頸部的に非開胸下に摘出し、術後の病理学的検索で粘膜関連リンパ組織 (mucosa-associated lymphoid tissue; MALT) の増殖により腫瘍を形成したと考えられる極めてまれな食道粘膜下腫瘍の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 57歳, 男性, 会社役員。

主訴: なし。

既往歴: 5年前, 狭心症のため大動脈冠動脈側副路術を受く。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 毎年上部消化管透視による胃癌検診を受け異常なしと言われていたが, 1991年11月下旬, 同様に検診を受けたところ偶然胸部上部食道に隆起性病変を指摘され, 12月2日当科を紹介された。

現症: 体格中, 栄養良, 発熱なし, 貧血・黄疸なし, 頸部・腋窩・鼠径部などの表在リンパ節を触知せず, 咽頭・扁桃の発赤なし。

臨床検査所見: 血液一般検査では貧血なく, 白血球

数5,200/mm³, 末梢血液分画像でも異常は認められなかった。血清生化学検査でも異常はなく, 腫瘍マーカーでは squamous cell carcinoma related antigen (SCC), carcinoembryonic antigen (CEA), alpha-fetoprotein (AFP), carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9) はすべて正常範囲内であった。

食道造影検査: 胸鎖関節部やや下方の高さに, 表面平滑で明らかなくびれをもつ山田III型ポリープ様の3.2×1.7cmの楕円型の隆起性病変が認められた。粘膜面には潰瘍形成・集中像などは認められず, また bridging fold も認められなかった。食道壁の浸潤硬化像は認められずよく伸展し, 造影剤の通過も良好であった。口側の拡張や食道軸の偏位も認められなかった (Fig. 1)。

食道内視鏡検査: 門歯裂より22~25cmの食道左後壁に隆起性病変が認められた。表面の色調の変化やびらん・凹窩などは認められず, 内視鏡の通過も良好であった (Fig. 2)。ルゴール散布を行ったが退色域は認められず正常粘膜と考えられた。生検では表面は正常粘膜であり, 上皮性ポリープや粘膜の過形成などは否定され, 間接的ではあるが粘膜下腫瘍と診断された。ポーリング生検を試みたが悪性所見は認められなかった。

上胸部 computed tomography (CT) 検査: 胸骨切痕のやや下方の高さに一致して食道内腔をほぼ占居する内部が均一な充実性腫瘍が認められた。壁外への突

Fig. 1 Radiogram of esophagus showing a superficial protruding tumor of the upper thoracic esophagus.

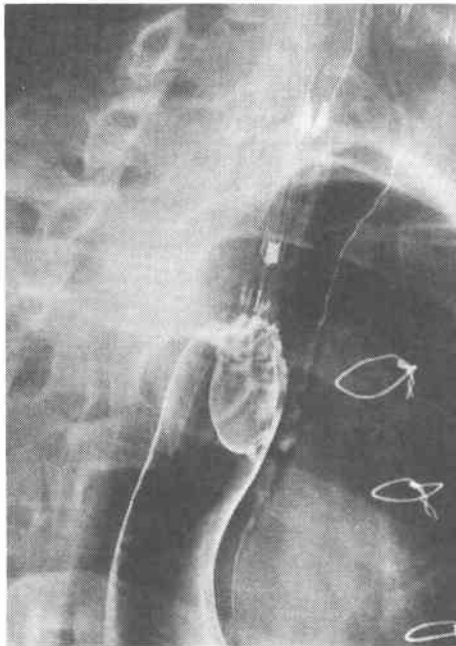
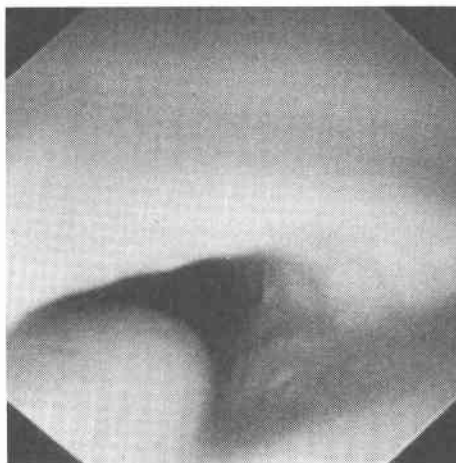


Fig. 2 Endoscopic finding showing a protruding tumor covered with normal mucosa.



出や浸潤は認められず、周囲の縦隔リンパ節の腫大も認められなかった (Fig. 3).

以上より良性食道粘膜下腫瘍、特にその頻度から平滑筋腫を最も疑い、経頸部的に非開胸で腫瘍摘出手術を行った。

Fig. 3 CT finding showing a homogenous tumor.

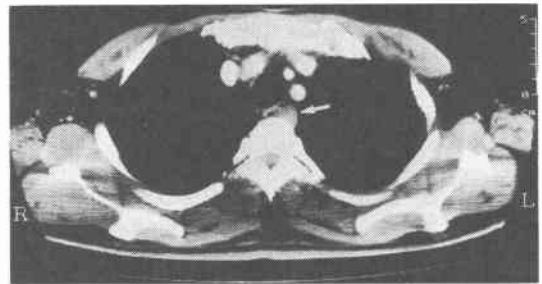
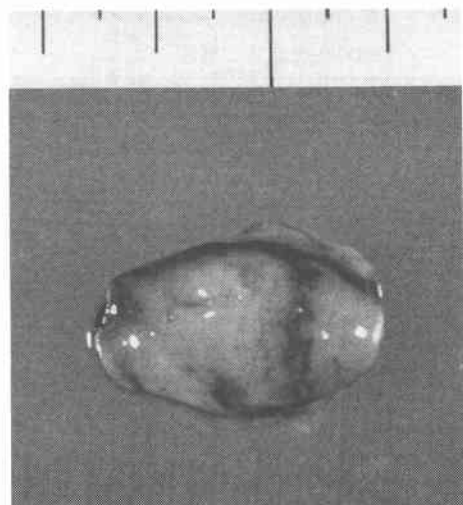


Fig. 4 Surgical specimen showing an elastic hard tumor with a smooth surface.

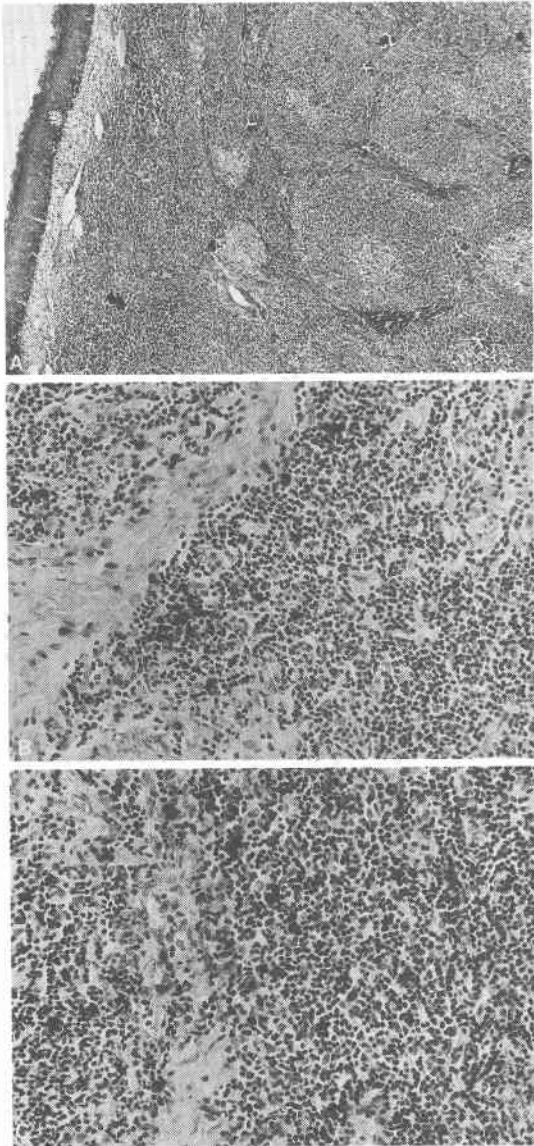


手術所見：左頸部に胸鎖乳突筋に沿う皮膚切開を加えて食道に到達し、これを下方に向かって剝離を進め、上部胸部食道を頸部に引き上げた後、腫瘍直上の縦走筋を長軸方向に切開し、周囲より剝離することによって容易に腫瘍の露出が可能であった。腫瘍の大部分は粘膜外切離が可能であったが、食道粘膜と剝離困難な部分があり、一部粘膜の合併切除を行った。なお周囲リンパ節の腫大は認められなかった。

摘出標本の肉眼所見：辺縁は平滑で、明らかな被膜は認められず、弾性硬の2.8×1.5×1.5cmの腫瘍であった (Fig. 4)。断面は黄白色均一で中心壊死や出血などは認められなかった。

病理組織所見：扁平上皮下にリンパ組織の増生が認められ、リンパ節や脾臓に見られる洞構造の形成は認められないが、リンパ濾胞の形成、tingible body macrophage が多数認められた (Fig. 5A)。免疫酵素抗体

Fig. 5 Microscopic finding showing remarkable lymphoid hyperplasia (A: HE stain $\times 10$). Immunohistochemical staining (B: Ig κ $\times 200$, C: Ig λ $\times 200$) showing polyclonal pattern.



法 (Ig κ , Ig λ など) では多クローン性であり, 悪性リンパ腫は除外された (Fig. 5B, C). 病理学的には benign lymphoid hyperplasia (BLH) と診断された.

患者は術後4日目より経口摂取を開始し, 特に合併症もなく術後10日目に退院した.

考 察

食道良性腫瘍は Suzuki ら¹⁾の本邦集計によると全

食道腫瘍の1.2%を占めるに過ぎず, その大半は平滑筋腫, 血管腫, 嚢腫で占められている. とりわけ本邦では平滑筋腫が88.6%を占め, その他は極めてまれである. 粘膜下腫瘍の形態をとるものとしては, これらの非上皮性良性腫瘍のほかに平滑筋肉腫, 悪性リンパ腫などの非上皮性悪性腫瘍があるが, これらは全食道悪性腫瘍の約1%に過ぎない. いずれにせよ, 本例のようにリンパ組織が反応性に増殖し腫瘤を形成して粘膜下腫瘍の形態をとったものは, われわれが検索しえた範囲ではこれまでに報告例が見られない.

一般に粘膜下腫瘍では食道腫瘍の特徴的の症状としての嚥下障害や胸骨後部痛などの発現頻度は低く, よほど大きくならない限り無症状で経過し, 検診や他の消化器系検査などで偶然発見されることが多く²⁾, 本例も同様であった.

食道粘膜下腫瘍は, 食道内腔に隆起する食道内型と食道内腔には隆起性病変は作らず食道外すなわち縦隔内部に腫瘍を作りあたかも縦隔腫瘍の食道圧迫様に見える食道外型に分けられるが³⁾, 本例は典型的な食道内型であった.

食道粘膜下腫瘍の診断には食道造影 X 線検査, 食道内視鏡, CT, 粘膜下造影法などが有用であり^{2)~4)}, 近頃では超音波内視鏡も普及しつつある⁵⁾が良悪性の鑑別は必ずしも容易ではない. 臨床的には, 径3cm以上の大きな腫瘍で表面粘膜に潰瘍を形成しているものや, 経過観察中に急激に増大するものは悪性の可能性が高い⁶⁾. 確定診断には病理学的検索が不可欠であるが, 表面を正常粘膜で覆われているため検索困難な例も多い. ポーリング生検, 穿刺針を用いた吸引生検, 高周波電流やレーザーによる粘膜切開下の生検, 純エタノール局注法による生検などが試みられている²⁾⁴⁾⁷⁾が必ずしも容易ではない. さらに摘出標本の病理組織学的検査でも良悪性の鑑別が困難な場合も少なくない²⁾⁶⁾ともいわれており十分な注意が必要と思われる. 本例は病理学的にはリンパ濾胞の著明な増生が認められることより, 濾胞性リンパ腫, MALT リンパ腫, Castleman リンパ腫, BLH, 梅毒の第II期などとの鑑別が必要であるが⁸⁾⁹⁾, 多クローン性で, 濾胞の大きさに大小不同性が目立ち, 周囲組織への拡がりは軽微であり, tingible body macrophage が多数認められることから濾胞性リンパ腫は否定的で, また, 腺上皮に腫瘍細胞が浸潤する lymphoepithelial lesion が全く見られず, centrocyte あるいは small cleaved cell 様の細胞増殖や単クローン性形質細胞の増殖もあまり見ら

れないことから MALT リンパ腫も否定される。さらに、濾胞周辺に線維、血管の増生や濾胞内に硝子化を伴った血管の増生も見られず、傍濾胞領域に著しい形質細胞の増生も見られないことから Castleman リンパ腫も否定される。また、類上皮細胞が見られず、血清検査上からも梅毒は否定される。以上より腫瘍性ではなく反応性にリンパ組織が限局性に増生した BLH と考えられる。

一般に消化管や気管支、泌尿生殖器などの粘膜には小腸の Peyer 板など特殊なものを除けば本来リンパ組織は存在せず、生後、体外と接しているため抗原刺激などによる慢性炎症性病変にひき続いてリンパ組織が形成され、これは粘膜の腺上皮と関連を持つことから粘膜関連リンパ組織 (MALT) と呼ばれ最近注目されている⁹⁾。このうち消化管粘膜だけに限れば腸関連リンパ組織 (gut-associated lymphoid tissue; GALT) ともいわれ、腸粘膜内で IgA を産生分泌し、全身免疫とは独立した局所免疫を担っている¹⁰⁾。結合織性被膜に被覆されたリンパ節とは別のこのような節外性リンパ組織は、そのリンパ装置の形成、発育および形態は抗原刺激の種類や量により変化することが特徴的であり¹¹⁾、本例はこの MALT (または GALT) が増殖し粘膜下腫瘍を形成したものと考えられる。なお、胃の reactive lymphoreticular hyperplasia (RLH) は MALT リンパ腫に相当するといわれ、純粹の RLH の存在は疑問視されており⁹⁾、本例もいわゆる RLH とはいえないが、谷口ら¹²⁾のいう粘膜下組織内に結節状に lymphoid hyperplasia を見る pseudolymphoma あるいは benign lymphoma と呼ぶにふさわしい粘膜下腫瘍を主体とする病型に相当するのではないかと考えられる。

治療法としては、2cm 以下の小さいもので良性の診断がつけば、まず内視鏡的摘除術の適応となる²⁾。通常のパロベクトミーと同様にスネアをかけて摘除する方法や腫瘍直上に縦に粘膜切開を加え核出術を行う方法などが全生検の意味も含めて行われており、侵襲も少なくまた確定診断も得られることから有用であるとされている²⁾。また2~3cm 以上の大きなものや環状、馬

蹄形のもの、強い管外性発育を示すもの、悪性が強く疑われるものなどでは開胸または開腹による腫瘍摘出術か食道切除術が必要となる。腫瘍到達経路としては、腹部食道を中心としたものでは開腹のみで行い、胸部下部を中心とした比較的小さいものでは左開胸を、さらに胸部中部、上部のものでは右開胸で行われているが⁴⁾⁶⁾、本例のように胸部上部のものでは頸部からの非開胸経路でも十分可能であった。一般的には小型で良性の可能性が高いものには腫瘍摘出術のみで良く、食道切除の適応となるものは、①腫瘍が広範囲にわたり粘膜と癒着しているもの、②腫瘍が全周性発育を示すもの、③悪性が強く疑われるもの、④手術操作にて修復困難な粘膜損傷を認めたもの、などである²⁾⁶⁾。

文 献

- 1) Suzuki H, Nagayo T: Primary tumors of the esophagus other than squamous cell carcinoma —Histologic classification and statistics in the surgical and autopsied materials in Japan—. Int Adv Surg Oncol 3: 73—109, 1980
- 2) 大森聖也, 掛川暉夫, 山名秀明ほか: 食道粘膜下腫瘍. 外科 47: 11—15, 1985
- 3) 小越和栄: 食道粘膜下腫瘍診断のすすめ方. 外科 47: 16—20, 1985
- 4) 藤巻雅夫, 唐木芳昭, 山田 明ほか: 食道粘膜下腫瘍. 外科 47: 4—11, 1985
- 5) 今村和之, 山城修治, 峯 豊ほか: 超音波内視鏡が有用であった食道平滑筋腫の1例. 消内視鏡 3: 1685—1689, 1991
- 6) 島津久明, 昌子正實, 小堀鷗一郎ほか: 食道粘膜下腫瘍の手術適応と術式. 外科 47: 21—27, 1985
- 7) 浅木 茂, 西村敏明, 佐藤 彰ほか: 消化管粘膜下腫瘍の生検. 消内視鏡 2: 545—550, 1990
- 8) 小野伸高, 若狭治毅: 消化管リンパ腫の病理学的特徴. 消内視鏡 3: 1261—1269, 1991
- 9) 青笹克之, 堀内敬介, 佐伯和則: リンパ節外の低悪性度群リンパ腫. 病理と臨 10: 25—30, 1992
- 10) 芹澤 宏, 三浦総一郎, 土屋雅春: Peyer 板と局所免疫. 臨免疫 23: 1644—1653, 1991
- 11) 名倉 宏: 節外性リンパ組織の構造と機能. 病理と臨 4: 466—474, 1986
- 12) 谷口春生: 胃の reactive lymphoreticular hyperplasia の病理. 胃と腸 16: 127—135, 1981

**A Case of Benign Lymphoid Hyperplasia of the Mucosa-associated Lymphoid Tissue
Presenting as a Submucosal Tumor of the Esophagus**

Yasuhiro Nakamura, Michio Maeta and Nobuaki Kaibara
The First Department of Surgery, Tottori University School of Medicine

A rare case of benign submucosal tumor of the esophagus is reported. A 57-year-old man was admitted to our clinic complaining of a superficial protruding tumor of the upper thoracic esophagus. On the basis of the results of barium X-ray, endoscopy and CT-scanning, the lesion was diagnosed as a benign submucosal tumor. The tumor was extirpated through the cervical route without thoracotomy. Macroscopic examination of the resected specimen revealed an elastic hard tumor without a capsule, measuring $2.8 \times 1.5 \times 1.5$ cm. Histopathological findings showed that the tumor was a very rare submucosal tumor of the esophagus arising from the mucosa-associated lymphoid tissue.

Reprint requests: Yasuhiro Nakamura The First Department of Surgery, Tottori University School of
Medicine
36-1 Nishimachi, Yonago, 683 JAPAN
