

食道平滑筋肉腫の2切除例

大阪市立大学第2外科

森 昭文 東野 正幸 大杉 治司 前川 憲昭
徳原 太豪 谷村 慎哉 福長 洋介 木下 博明

食道平滑筋肉腫はまれな疾患であり、われわれが集計しえた本邦報告例は自験2例をあわせて52例にすぎない。食道平滑筋肉腫は内視鏡下生検による術前組織診が困難で、自験2例でも潰瘍を形成した1例は術前組織診断は可能であったが、他の1例は腫瘍表面が正常粘膜に覆われ不可能であった。超音波内視鏡検査は腫瘍の壁内の局在部位診断に有用で、壊死巣も指摘しえた。血管造影 X 線検査上、食道平滑筋肉腫は自験例やその他の報告例において hypovascular であるが、食道平滑筋肉腫は hypervascular な像を示した。2例ともに下部食道切除、胃管による再建が施行され、病理所見上紡錘形腫瘍細胞の束をなした錯綜像、高細胞密度と高率の Mitosis ($>5\text{HPE}$) が観察され、食道平滑筋肉腫と診断した。以上食道平滑筋肉腫の術前診断には超音波内視鏡、血管造影などが有用であると思われた。

Key words: esophageal leiomyosarcoma, endoscopic ultrasonogram of esophageal leiomyosarcoma

はじめに

食道平滑筋肉腫はまれな疾患であり、食道悪性腫瘍中0.1~2.2%¹⁾を占めるにすぎない。最近当教室において食道平滑筋肉腫の2切除例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1: 63歳, 女性

主訴: 嚥下困難, 背部痛

家族歴, 既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1989年6月頃より, 固形物摂取時に嚥下困難および背部痛が出現した。同年10月近医で行われた食道造影 X 線検査で, 異常陰影を指摘され, 1990年1月25日当院に入院となった。

入院時現症: 身長144cm, 体重51.5kg, 脈拍数74/min 整, 血圧108/60mmHg, 栄養状態は良好で, 貧血, 黄疸は認められなかった。

入院時検査成績: 血液一般検査, 生化学検査, 腫瘍マーカーに異常はなかった。

食道 X 線検査所見: 下部食道が腫瘤により前方へ圧排偏位されていたが, 潰瘍形成は認められなかった (Fig. 1a)。

食道内視鏡検査所見: 後壁を中心に約半周を占める隆起性病変を認めたが, 正常粘膜に覆われ, そのため

biopsy では腫瘍細胞は得られなかった。

胸部 CT 所見: 下行大動脈に接して約7×5cmの境界明瞭な腫瘤が見られ, 不均一に enhance された (Fig. 1b)。

超音波内視鏡検査所見: 腫瘤は低エコー像を示し, 不均一に描出された。第5層は保たれ, 第3層が内腔に圧排されていることから, 固有筋層原発と考えられた。なお縦隔リンパ節の腫脹は認められなかった (Fig. 1c)。

血管造影 X 線検査所見: 左胃動脈の上行枝から分岐する多数の食道枝が栄養血管となり, 腫瘍濃染像が認められた (Fig. 2)。

手術所見: 1990年2月5日, 左第6肋骨床開胸を行ったところ, 腫瘤は下部食道後壁を中心にみられた。同部の外膜は保たれ, 周囲臓器への浸潤, 縦隔リンパ節の腫脹はみられなかった。そこで腫瘍を含めて食道を切除し, 胃管を用いて胸腔内で吻合した。

切除標本: 腫瘍径は8.0×7.5×6.6cmで, 粘膜面に潰瘍形成はみられなかったが, 中心部に壊死を認めた。

病理所見: 腫瘍細胞は長紡錘形を呈し, 核の両端が長桿状で束をなして錯綜し, 細胞密度が高く, 核の多形性, mitotic figure が高率 ($>5\text{HPF}$) に認められ, 食道平滑筋肉腫と診断された (Fig. 3)。

術後経過: 術後経過は良好で嚥下困難, 背部痛は消失し, 1990年3月18日軽快退院した。

症例2: 73歳, 男性

<1992年9月9日受理> 別刷請求先: 森 昭文
〒545 大阪市阿倍野区旭町11-5-7 大阪市立大学医学部第2外科

Fig. 1 a: Esophagogram revealed displacement of the lower esophagus by a extramural mass (⇔).

b: Enhanced CT showed the unevenly enhanced mass in the ventral region of the descending aorta.

c: Endoscopic ultrasonogram showed low echoic lesion in the fourth layer (⇨). (the third layer; ⇨, the fifth layer; ⇨)

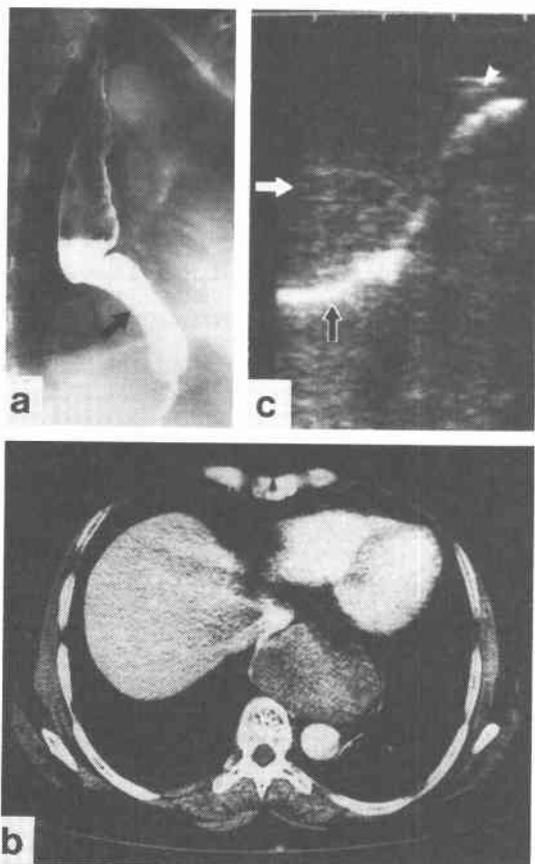


Fig. 2 Arterial angiogram showed hypervascular lesion perfused from the left gastric artery.

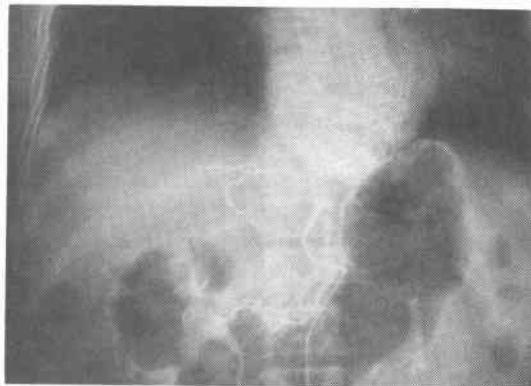
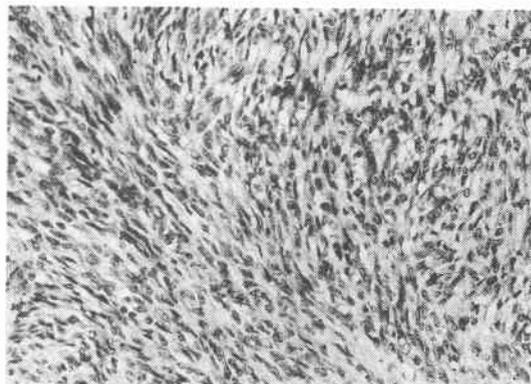


Fig. 3 Microscopic examination showed the interlacing bundles of spindle cells, high cellularity, pleomorphism and the presence of mitosis (H. E., ×400).



主訴：胸骨後部不快感

家族歴，既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1989年10月頃より，胸骨後部不快感が出現したが，通過障害は認められなかった。近医での食道造影 X 線検査で異常陰影を指摘され，同年12月8日当科に紹介され入院となった。

入院時現症：身長156cm，体重56.8kg，脈拍80/min 整，血圧108/62mmHg，貧血，黄疸は認められず，栄養状態は中等度。

入院時検査成績：TP 5.8g/dl と軽度の低蛋白血症

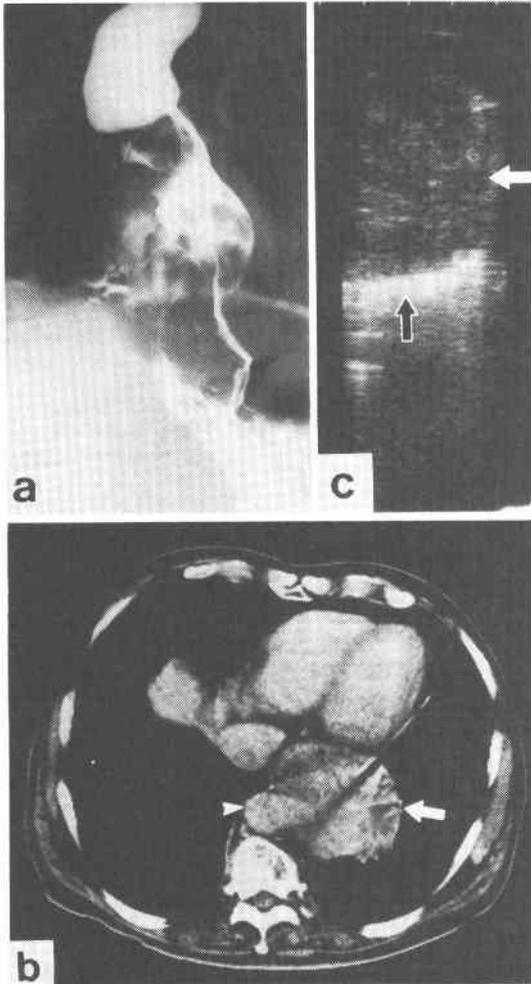
が認められる以外，血液一般検査，腫瘍マーカーともに異常はなかった。

食道造影 X 線検査所見：下部食道を中心に，腫瘤状の陰影欠損とその中央部に深い潰瘍を思わせる造影剤のたまりが認められ，腫瘤は一部，胃噴門部までおよんでいた (Fig. 4a)。

食道内視鏡検査所見：切歯より30cm の位置に長径約9cm の結節状の病変が右壁を中心に認められた。中央部には深い潰瘍を伴い，潰瘍底の biopsy により高倍率1視野に2個の mitotic figure が観察され，食道平滑筋肉腫と術前診断された。

胸部 CT 所見：腫瘤は胸部大動脈との境界が不明瞭で，不均一に enhance され，大動脈への直接浸潤も疑われた (Fig. 4b)。

Fig. 4 a: Esophagogram revealed a large filling defect in the lower esophagus, extending to the stomach.
 b: Enhanced CT showed a large mass (⇒) adjoining the aorta (▷).
 c: Endoscopic ultrasonogram showed a large low echoic lesion (⇒). (tunica externa; →)



超音波内視鏡検査所見：腫瘍の内部エコーは不均一で、腫瘍が巨大なため壁内局在部位は判定できなかったが、外膜は保たれ、大動脈への浸潤はないと考えられた。また縦隔内リンパ節の腫脹も認められなかった (Fig. 4c)。

血管造影 X 線検査所見：腹腔動脈造影では、病巣は左胃動脈、左下横隔動脈より血行を受けており不均一な腫瘍濃染像や、A-V シャントも認められた (Fig. 5)。

Fig. 5 On celiac angiogram, the lesion showed hypervascular pattern (▶).

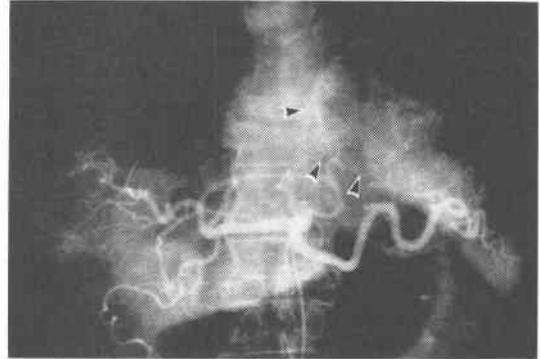
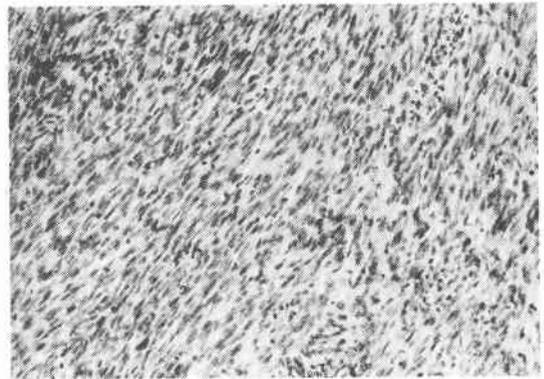


Fig. 6 Microscopic examination showed the interlacing bundles of spindle cells, high cellularity, moderate pleomorphism and the presence of mitosis (H.E., ×400).



手術所見：1990年1月17日、斜め胸切り法で、左開胸・開腹を行ったところ、下部食道に血管に富んだ手拳大の腫瘍が認められ、一部胃噴門部におよんでいた。しかし周囲臓器への浸潤、リンパ節の腫脹は認められなかった。そのため腫瘍を含めて下部食道を切除し、胃管を用いて胸腔内で吻合した。

切除標本：病変は径10.0×9.5×5.5cmで、粘膜面では中央部に深い潰瘍を伴う結節状隆起を呈し、一部胃にも及んでいたが、病巣のほとんどは食道側に存在し食道原発であると考えられた。

病理所見：腫瘍細胞は長紡錘形を呈し、核の両端が長桿状で束をなして錯綜し、一部では柵状配列も認められた。核の多形性は中等度であるが、細胞密度が高く、高倍率30視野で mitotic figure が5個以上観察され、食道平滑筋肉腫と確定診断された (Fig. 6)。

Table 1 Diameter of tumor, ulcer formation and mode of treatment in patients with esophageal leiomyosarcoma reported in the Japanese literature (~1989)

Diameter of tumor (cm)	ulcer formation	treatment		
		enucleation	esophagectomy	others
<3.0	2	1	1	0
3.0~4.9	5	3	2	0
5.0~9.9	26	5	21	0
10.0<	12	2	6	4
unkown	7	0	2	5
total	52	22	32	9

術後経過：術後経過は良好であり、胸骨後部不快感、低蛋白血症も消失し、1990年3月12日軽快退院となった。

考 察

食道平滑筋肉腫はまれな疾患であり、われわれが集計した本邦報告例は自験2例を併せて52例であった。そのうち詳細に記載のあったものでは、性別は男性36例、女性14例と男性に多く、年齢は50歳代60歳代に集中している。主訴は嚥下困難が大多数であり、潰瘍を伴うもの、直径3cm以上のものが多く、食道平滑筋腫とは違った特徴を示している (Table 1)。

しかし実地臨床上、良悪の判断は難しく、とくに潰瘍を伴わない例では内視鏡下生検で組織診を得ることは困難である。strip biopsy や boring biopsy なども工夫されているが、検出率は低く、侵襲も大きいと思われる。一方超音波内視鏡検査は食道壁層構造の連続性より比較的容易に腫瘍の壁内局在部位を確定でき、また周囲臓器への浸潤、リンパ節転移の有無の判定に有用である。しかし内部エコーの性状のみから良悪の判定を下すことは現時点では難しいとされている。血管造影像上、自験2例の食道平滑筋肉腫は京野²⁾の報告と同様に hypervascular な像を示し、造影CTでも腫瘍は enhance された。一方平滑筋腫は角村³⁾の報告、また自験例においても hypovascular であった。したがって超音波内視鏡、血管造影、enhance CT ある

いは超音波内視鏡下に経静脈性に enhance することで両者の鑑別が出来る可能性が示唆された。手術方針としては腫瘍摘出術のみでも9年以上の長期生存例^{4,5)}が認められるが、約1年で局所再発した例⁶⁾もみられるため、腫瘍を含めた食道切除術を選択すべきであると思われる。また島津⁷⁾によると、リンパ節転移が認められた症例は手術不能なかなり末期の症例のみで、広範囲なリンパ節の郭清は必要ないとしている。自験2例においてもリンパ節郭清は行わなかったが、1991年8月現在再発の徴候なく生存中である。

文 献

- 1) 遠藤光夫, 小林誠一郎, 榊原 宣ほか: 食道平滑筋肉腫の1治験例. 胃と腸 9: 71-76, 1969
- 2) 京野昭一, 恩田昌彦, 山下精彦ほか: 無症状に経過し、術前に悪性が疑われた食道平滑筋肉腫の1例. 日臨外医会誌 48: 1390, 1987
- 3) 角村純一, 宮田正彦, 森友 猛ほか: 食道平滑筋腫瘍の画像所見の検討. 日外会誌 90: 290, 1989
- 4) 岡本 堯, 沢井健次, 天野富薫ほか: 食道平滑筋肉腫の1例. 外科 31: 1434-1436, 1969
- 5) 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. 日消病会誌 67: 270-275, 1970
- 6) 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: 599-1382, 1970
- 7) 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. 日外会誌 84: 355-368, 1983
- 8) 久礼三子雄, 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
- 9) 山口初宏, 山本義樹, 浅井俊夫ほか: 食道平滑筋肉腫の1例. Gastroenterol Endosc 29: 391-392, 1987
- 10) 板橋敏之, 阿保七三郎, 工藤 保ほか: 広汎リンパ節転移を来した食道平滑筋肉腫の1手術例. 秋田医師会誌 38: 119-123, 1986
- 11) 柴田佳久, 鈴木一雄, 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
- 12) 真田勝弘, 飯田道夫, 広岡一真ほか: 食道平滑筋肉腫で食道切除後の再建胃管に発生した胃癌の1例. 消外 11: 1671-1675, 1988

Report of Two Cases of Esophageal Leiomyosarcoma

Akifumi Mori, Masayuki Higashino, Harushi Ohsugi, Noriaki Maekawa, Taigo Tokuhara,
Shinya Tanimura, Yohsuke Fukunaga and Hiroaki Kinoshita
Second Department of Surgery, Osaka City University Medical School

Esophageal leiomyosarcoma is a rare disease. Only 52 cases have been reported, including our two cases. Histological diagnosis of esophageal leiomyosarcoma is rarely made preoperatively. In one of our cases histological diagnosis was obtained because of intramural growth and ulcer formation of the lesion, but in the other case, it could not be made because the lesion was covered with normal mucosa. Endoscopic ultrasonography revealed the proper location of the lesion and the presence of necrosis in the lesion. Therefore, it was reported that esophageal leiomyoma showed hypovascularity. Angiography showed hypervascularity of the lesion in the two cases. Resection of the lower half of the esophagus bearing the lesion and reconstruction using a gastric roll was performed in these cases. Pathological diagnosis of esophageal leiomyosarcoma was obtained because of the interlacing bundles of spindle cells (tumor cells), high cellularity and the presence of more than 5 mitoses in one visual field. In addition, upper GI tract examination, endoscopy, CT scanning, endoscopic ultrasonography and angiography were found to be informative in obtaining proper diagnosis of esophageal leiomyosarcoma.

Reprint requests: Akifumi Mori Second Department of Surgery, Osaka City University Medical School
1-5-7, Asahi-machi, Abeno-ku, Osaka, 545 JAPAN
