

十二指腸原発平滑筋芽細胞腫の1例

東京共済病院外科

丸森 健司 矢部 清寿 宮本 洋寿
小林 寛 佐藤 雅昭

症例は46歳の男性。心窩部痛を主訴として来院した。上部消化管造影および上部消化管内視鏡検査にて、十二指腸球部小彎側に一部陥凹を伴った粘膜下腫瘍を認め、生検を施行したところ、平滑筋由来の分類不可能な腫瘍細胞があり、CT検査でも十二指腸に腫瘍像を認めた。このため十二指腸粘膜下腫瘍の診断のもとに開腹。腫瘍は十二指腸球部小彎側と臍頭部の間に存在したが、臍臓など周囲臓器との癒着なく、十二指腸切開腫瘍摘出術を施行した。組織所見では、紡錘型および多角型の類上皮性細胞が多数存在し、その豊富な細胞質は好酸性であった。以上より腫瘍は平滑筋芽細胞腫と診断された。平滑筋芽細胞腫は、その多くが胃原発であり、十二指腸原発は極めて希である。今回われわれは十二指腸原発平滑筋芽細胞腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

Key word: leiomyoblastoma

はじめに

平滑筋芽細胞腫は、1960年 Martin¹⁾が平滑筋腫にも平滑筋肉腫にも属さない平滑筋由来の腫瘍として報告したのが最初であり、その後1962年 Stout²⁾が、leiomyoblastoma と呼び、1969年世界保険機構において独立した軟部組織腫瘍の1つとして分類された。以来数多くの症例報告をみているが、その多くが胃原発であり、他臓器原発は少ない。今回われわれは十二指腸原発平滑筋芽細胞腫の手術例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：49歳、男性

主訴：心窩部痛

既往歴：1歳時、脳性小児麻痺

現病歴：平成元年初旬より心窩部痛出現し、同2月9日当院内科受診。2月13日上部消化管内視鏡検査にて、十二指腸球部小彎前壁に潰瘍を伴った、粘膜下腫瘍様病変を認めたため、精査目的で当院内科入院後、手術目的で当科転科となった。

入院時現症：身長167cm、体重51kg、言語障害および不随意運動が認められた。眼瞼結膜に貧血なく、腹部は平坦、腫瘤を触知せず、その他身体所見に特記すべきことはなかった。

上部消化管造影所見：十二指腸球部に陥凹を伴う表面比較的平滑な隆起性病変が認められた。また、十二指腸下行脚に直径約2cmの憩室を認めた (Fig. 1)。

上部消化管内視鏡所見：十二指腸球部小彎やや前壁に、中心陥凹を伴う約4cm大の粘膜下腫瘍が認められた。表面は比較的平滑で色調の変化は認められなかった。同部より生検を施行し、平滑筋由来と思われる腫瘍細胞増殖が認められたが、明らかな悪性所見は得られなかった (Fig. 2)。

腹部CT所見：臍頭部、胆嚢、下大静脈に接して、3×4×5cmの腫瘍が認められ、contrast CTでは、腫

Fig. 1 Gastrointestinal barium study reveal a tumor with small ulcer on the tumor in the first portion and diverticulum in the third portion.

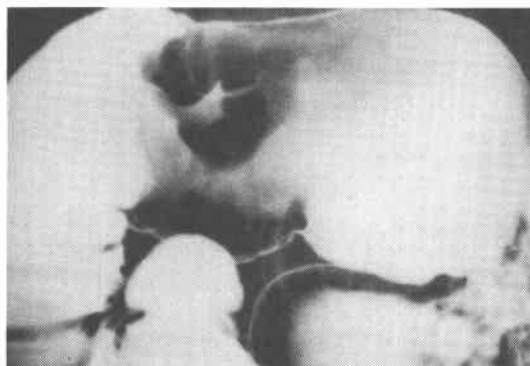


Fig. 2 Gastroduodenoscopy reveal submucosal tumor with ulcer on the tumor which surface is smooth and was recognized no change of color.

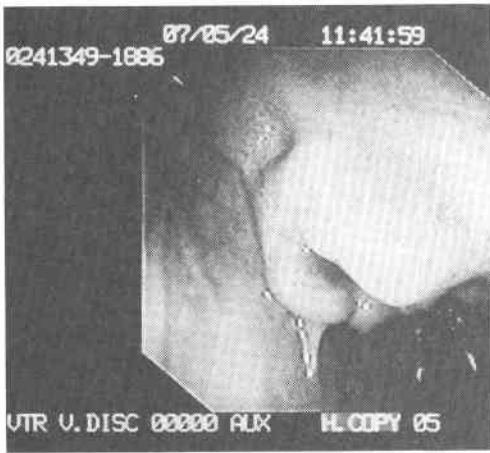
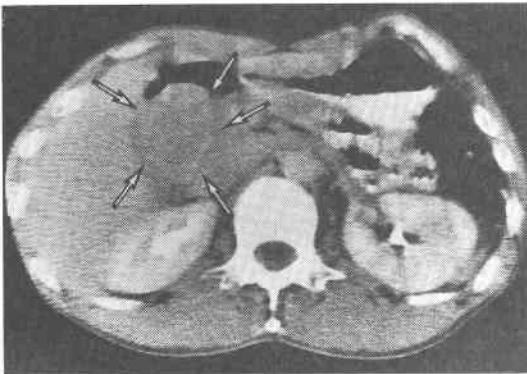


Fig. 3 CT scan demonstrate a tumor between gall bladder, pancreatic head and inferior v. cava.



瘍内部が不均一に増強された。なお、腹部血管造影および内視鏡的逆行性胆道膵管造影を施行するも、腫瘍濃染像や、膵胆管系の圧排所見は認められなかった (**Fig. 3**)。

手術所見：開腹するに腹水は認められず、肉眼的に肝転移、リンパ節腫大はなく、腫瘍は弾性軟で周囲臓器と癒着することなく限局性で、悪性を疑わせる所見がないことから、腫瘍核出術の方針をとった。まず、十二指腸漿膜を切開、周囲の筋層・粘膜下層より腫瘍を鈍的に剝離していき、腫瘍が一部粘膜と癒合していたため、粘膜の一部を含めて腫瘍を摘出した。さらに十二指腸下行脚の憩室に対し、縫縮術を施行し、手術を終了した。

Fig. 4 Fresh resected specimen is 5×4×4cm in size.

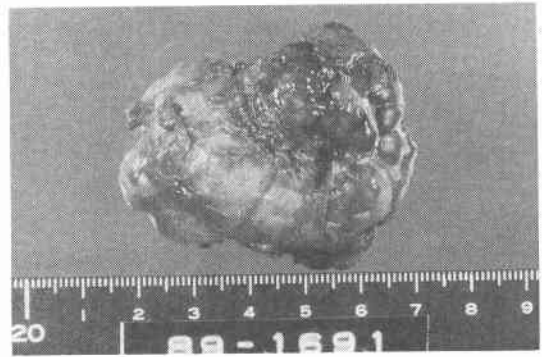


Fig. 5 Cut surface of tumor consist of a mass of soft tissue with nodular configuration. The color of the tumor is grey yellow in color.



切除標本：腫瘍は円形で5×4×4cm、割断面で灰色、黄色で結節性の構造をとっていた (**Fig. 4, 5**)。

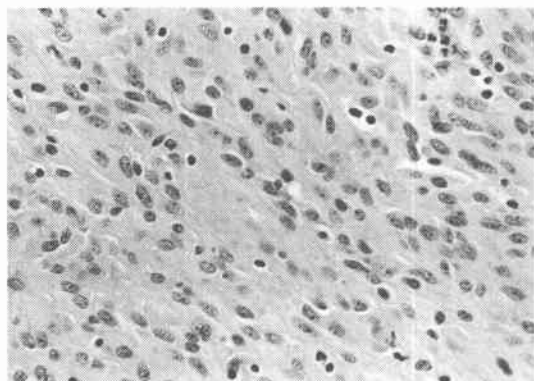
病理組織所見：Hematoxylin-Eosin 染色では、紡錘形および多角形の類上皮性の細胞が多数存在し、その豊富な細胞質は好酸性であった。腫瘍の中心部には繊維化が認められた。また、強拡大視野における細胞分裂像は10未満であり、十二指腸原発平滑筋芽細胞腫と診断された (**Fig. 6**)。

患者は術後経過良好にて第32病日に軽快退院し、その後現在まで再発・転移を疑わせる所見は認められていない。

考 察

平滑筋芽細胞腫は1960年、Martinら¹⁾が報告して以来、400例を越える報告²⁾があり、本邦でも1964年吉田ら⁴⁾が胃原発腫瘍として報告して以来、200例以上の平滑筋芽細胞腫が報告されている。平滑筋芽細胞腫は、

Fig. 6 Section reveal spindle to polygonal epithelioid cells with abundant and eosinophilic cytoplasm. The mitotic figure is less than 10 in high power field (HE, ×200).



胃原発が多いとされ、Lavinら⁵⁾によれば、全平滑筋芽細胞腫の約80%占めるとされている。一方、胃以外の臓器、例えば小腸、子宮、大網、腸間膜、後腹膜、縦

隔、表在軟部組織など多くの臓器にも、平滑筋芽細胞腫の報告が見られ、中でも十二指腸原発平滑筋芽細胞腫はまれであり、本邦では1971年西田ら⁶⁾が報告して以来、10数例の報告があるにすぎない。今回われわれが検索しえた本邦報告例15例、海外報告例4例の平滑筋芽細胞腫(**Table 1**)について検討すると、男女比は1:1、年齢は27歳~69歳にわたり、平均50歳であった。十二指腸内占居部位は、判明した17例中11例が下行脚にあり、球部に発生した症例は小原ら¹⁴⁾、徳元ら¹⁸⁾、Oliveiraら³⁾と自験例の4例のみであった。また、術前に確定診断された例はみられず、わずかに井上ら¹⁶⁾の報告と自験例で生検組織により、平滑筋由来の腫瘍と診断できたに過ぎず、その正確な病理診断は、術中組織学診断も含め、切除した腫瘍の組織学的な検索に委ねなくてはならないようである。治療は治療不明例を除く17例に手術が施行されており、腫瘍の大きさ、合併病変、術前診断などに準じて術式が異なっており、十二指腸切開、腫瘍核出術が9例と最も多く、臍頭十二指腸切除が5例、十二指腸部分切除(胃合併

Table 1 15 casas in Japan and 4 cases in foreign countries

author	Yrs	age	sex	lesion	preop-Dx	operation	malignancy
Nishida ⁶⁾	'71	27	F	2nd port.	retroperitoneal tumor	duodenotomy	malig.
Satou ⁷⁾	'75	40	M	2nd port.	submucosal tumor of duodenum	duodenotomy	benign
Oota ⁸⁾	'78	41	M	2nd port.	duodenal tumor	partial duodenectomy (subtotal gastrectomy)	?
Kumamoto ⁹⁾	'80	53	F	2nd port.	submucosal tumor of duodenum	?	?
Iida ¹⁰⁾	'81	29	M	2nd port.	duodenal tumor	?	benign
Iida	'81	54	F	?	pancreatic tumor	duodenotomy	benign
Yamakawa ¹¹⁾	'83	42	M	2nd port.	leiomyosarcoma of duodenum	duodenotomy	malig.
Wada ¹²⁾	'84	61	F	2nd port.	submucosal tumor of duodenum	duodenotomy	?
Sasaya ¹³⁾	'85	60	M	2nd port.	non epithelial tumor of duodenum	pancreaticoduodenectomy	malig.
Obara ¹⁴⁾	'85	56	F	bulb	non epithelial tumor of duodenum	partial duodenectomy (subtotal gastrectomy)	benign
Horikoshi ¹⁵⁾	'85	55	F	2nd port.	pancreatic cartinoma	pancreaticoduodenectomy	?
Inoue ¹⁶⁾	'87	54	M	3rd port.	leiomyogenic tumor of duodenum	pancreaticoduodenectomy	malig.
Nagino ¹⁷⁾	'87	61	F	2nd port.	leiomyogenic tumor of duodenum	pancreaticoduodenectomy	malig.
Tokumoto ¹⁸⁾	'90	68	M	bulb	submucosal tumor of duodenum	partial duodenectomy (subtotal gastrectomy)	malig.
Our case	'90	46	M	bulb	leiomyogenic tumor of duodenum	duodenotomy	benign
Gerszten ¹⁹⁾	'69	41	M	2nd port.	?	duodenotomy	benign
Lavin	'72	?	?	?	?	duodenotomy	malig.
Ollivier ²⁰⁾	'79	60	M	2nd port.	pancreatic cartinoma	duodenotomy	benign
Oliveira	'84	69	F	bulb	?	pancreaticoduodenectomy	malig.

切除を含む)が3例であった。腫瘍の悪性度に関しては、胃原発平滑筋芽細胞腫が一般に良性腫瘍としての経過をとるのに対し、十二指腸原発平滑筋芽細胞腫は悪性病変としての経過をとることが多く、病理組織の判明している15例中8例が悪性病変としての経過をとった。Lavinらによれば、胃原発平滑筋芽細胞腫は、70%~80%が良性であるのに対し、胃以外の臓器に発生した平滑筋芽細胞腫では60%~70%が再発、転移を見た報告しており、十二指腸原発平滑筋芽細胞腫も、その経過において十分注意が必要と言える。今回われわれの症例は、腫瘍が周囲との癒着なく限局しており、明らかな転移も認められなかったため、腫瘍核出術を施行するに至った。ところで、平滑筋芽細胞腫の病理学的な良悪性の鑑別については、mitotic rate²⁾、小細胞化¹⁹⁾、alveolar pattern¹⁹⁾、reticulum fiberの有無¹⁹⁾、腫瘍の大きさ、といったものを指標とする報告があるが、反面、小野ら²²⁾やAbramsomら²³⁾は、腫瘍の大きさや、mitotic rateと悪性度とは無関係であると報告している。したがって、組織所見のみから良悪性を判定するのは困難であり、明かな転移や他臓器浸潤、再発といった臨床経過をもって悪性とした報告例も少ない。また、鑑別診断として神経鞘種があるが、最近では筋原性の染色としてActin, Desminが、神経原性の染色としてNSE, S-100などの免疫染色法が施行されている。以上、十二指腸原発平滑筋芽細胞腫の1例を文献的考察を加え報告したが、十二指腸原発平滑筋芽細胞腫は、術前診断が困難であり、転移、再発など悪性の経過をとることもあり、術前、術中診断、そして術後の経過観察に十分注意する必要があると思われる。

稿を終えるにあたり、多大なご指導を頂きました昭和大学豊洲病院外科、安井 昭教授、熊谷一秀講師、真田 裕講師に深謝致します。

文 献

- 1) Martin JF, Bazin P, Feroldi J et al: Intramural myoid tumors of the stomach. Microscopic consideration on 6 cases. *Ann Ant Pathol* 5: 484-497, 1960
- 2) Stout AP: Bizarre smooth muscle tumors of the stomach. *Cancer* 15: 400-409, 1962
- 3) Oliveira F, Oliveira FJ, Martins MI: Malignant leiomyoblastoma (epithelioid leiomyosarcoma of the duodenum). *Can J Surg* 27: 299-300, 1984
- 4) 吉田 明, 小針頼晴, 渡辺床造: 胃平滑筋腫と思われた1例について. *日医放線会誌* 24: 446-447, 1964
- 5) Lavin P, Hajdu SI, Foote FW: Gastric and extragastric leiomyoblastomas. *Clinicopathologic study of 44 cases. Cancer* 29: 305-311, 1972
- 6) 西田 匡, 山本利博, 武田定征ほか: 十二指腸悪性平滑筋芽細胞腫の1治験例. *日消病会誌* 68: 779, 1971
- 7) 佐藤勝朗, 小泉文明, 嶋村幹夫ほか: 十二指腸下部の leiomyoblastoma の1例. *日消病会誌* 72: 111, 1975
- 8) 太田 保, 田村精平, 日伝晶夫ほか: 十二指腸原発巨大平滑筋芽細胞腫の1例. *癌の臨* 24: 70-75, 1978
- 9) 熊本吉一, 三浦利重, 新井三郎ほか: 十二指腸より発生した平滑筋芽細胞腫の1例. *神奈川医会誌* 7: 155, 1980
- 10) 飯田萬一, 山口正直, 松岡規男: 胃十二指腸平滑筋芽細胞腫の3例. *日病理会誌* 70: 290, 1981
- 11) 山川良一, 城所佐吉, 上所 洋ほか: 十二指腸原発平滑筋芽細胞腫の1例一本邦14例の臨床的検討一. *山梨医大誌* 10: 267-271, 1983
- 12) 和田一穂, 伝法洋子, 石黒昌生ほか: 十二指腸平滑筋芽細胞腫の1例. *日消病会誌* 81: 126, 1984
- 13) 笹谷 守, 太田 茂, 矢野 博ほか: 瘻孔形成した十二指腸平滑筋肉腫の1例. *日消病会誌* 82: 739, 1985
- 14) 小原長生, 正義之, 武藤良弘ほか: 幽門輪にまたがって発生した平滑筋芽腫の1例. *沖縄医会誌* 22: 310, 1985
- 15) 堀越 衛, 三島清寿, 根岸七雄ほか: 十二指腸平滑筋芽細胞腫の1例. *日臨外医会誌* 48: 122, 1985
- 16) 井上正則, 島 仁, 石川秀明ほか: 十二指腸平滑筋芽腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 29: 559-565, 1987
- 17) 柳野正人, 近藤成彦, 金井道夫ほか: 十二指腸原発平滑筋芽細胞腫の1例. *胃と腸* 22: 729-734, 1987
- 18) 徳元 攻, 徳重順治, 佐伯啓三ほか: 十二指腸平滑筋芽細胞腫の1例. *日消病会誌* 87: 852-856, 1990
- 19) Appleman H, Helwig EB: Gastric epithelioid leiomyoma and leiomyosarcoma (leiomyoblastoma). *Cancer* 38: 708-728, 1976
- 20) Gerszten E, Kay S: Light and electron microscopic study of a leiomyoblastoma of the duodenum. *Am J Dig Dis New Series* 14: 350-355, 1969
- 21) Ollivier JM, Verwaerde JC et al: Localisation duodénale dun leiomyoblastome valeur de l'embolisation pre-opératoire. *Gastroenterol Clin Biol* 3: 255-258, 1985

22) 小野隆男, 篠村達雄, 天野一之ほか: 胃平滑筋芽細胞腫の1例. 日臨外医学会誌 46: 379-389, 1985

23) Abramson DJ: Leiomyoblastoma of the stomach. Surg Gynecol Obstet 136: 118-125, 1973

A Case of Leiomyoblastoma of the Duodenum

Takeshi Marumori, Kiyozumi Yabe, Yoju Miyamoto, Yutaka Kobayashi and Masateru Sato
Surgery, Federation of National Public Service and Faciliated Personel Mutual Aid Association,
Tokyo Mutual Hospital

We present a rare case of leiomyoblastoma of the duodenum. A 46-year-old man was referred to our hospital with a 6-month history of epigastric pain. Upper gastrointestinal barium study and gastroduodenoscopy revealed a tumor with bridging folds in the first portion of the duodenum. A small ulceration was noted on the tumor. Biopsy of the tumor showed unclassified cells in smooth muscle origin. CT/scan confirmed that the tumor was confined within the duodenum. The diagnosis of duodenal submucosal tumor was made. At laparotomy, the tumor which was adherent to the surrounding organs, was recognized between the duodenum and pancreas. A duodenotomy was made and the tumor was completely excised. The resected specimen showed a nodular tumor 5 × 4 × 3 cm in size. Histological examination of the tumor revealed leiomyoblastoma, and spindle and polygonal epithelioid cells with abundant eosinophilic cytoplasm. The diagnosis was leiomyoblastoma.

Reprint requests: Takeshi Marumori Department of Surgery, Showa University School of Medicine
1-5-8 Hatanodai, Shinagawa-ku, Tokyo, 142 JAPAN
