

## 胃壁外有茎性発育と著明な嚢胞化を示した胃平滑筋芽細胞腫の1例

名古屋市立大学第2外科

川村 弘之 片岡 誠 桑原 義之 呉山 泰進  
岩田 宏 篠田 憲幸 加島 健利 佐藤 篤司  
服部 浩次 中野浩一郎 正岡 昭

特異な発育形態を呈した胃平滑筋芽細胞腫の1例を報告する。症例は69歳の女性、右季肋部の手拳大の腹部腫瘤を主訴に入院。超音波検査で、腫瘤は上極と下極が嚢胞性で中央部が充実性であった。MRIで、腫瘤は壁外発育型の胃粘膜下腫瘍と判明。内視鏡的生検術後に、生検部からの出血をきたし緊急手術を施行。開腹時、胃幽門部大彎側より胃壁外有茎性発育した腫瘤を認めた。腫瘤を含め胃楔状切除を施行。組織学的に悪性度の低い胃平滑筋芽細胞腫と診断された。本症は約10%が悪性例であるため、手術術式に関しては、腫瘍多発例や胃壁への浸潤傾向が強い場合には、広範囲胃切除が必要と考えられるが、自験例のごとく胃外に有茎性に発育し、胃壁への浸潤傾向がなく、リンパ節腫大も認めない場合には、楔状切除で十分な治癒切除が得られると考えられた。

**Key words:** leiomyoblastoma of the stomach, pedunculated extramural progression, findings of magnetic resonance imaging

### はじめに

胃平滑筋芽細胞腫は比較的新な疾患で、術前診断が困難なことが多く、また手術術式についても確立した見解は得られていない<sup>1)</sup>。今回、われわれは胃壁外有茎性発育と著明な嚢胞化を示した胃平滑筋芽細胞腫の1例を経験したので報告するとともに、本症の診断および治療に関する問題点を中心に若干の文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：69歳、女性

主訴：腹部腫瘤

既往歴：66歳時、重症筋無力症合併胸腺腫にて拡大胸腺・胸腺腫摘出術を受けた。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1991年12月、腹部腫瘤を自覚し当院受診。1992年2月7日、精査目的入院となる。

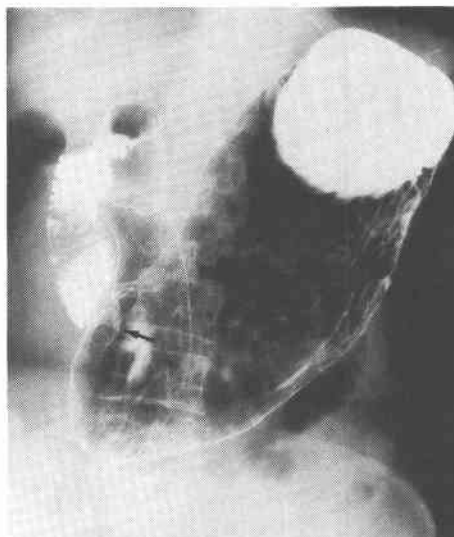
入院時現症：右季肋部に手拳大、境界明瞭、表面平滑、弾性軟で可動性良好な腫瘤を触知。

入院時検査成績：carbohydrate antigen19-9(CA19-9)が72U/mlとやや高値を示したが、他の検査成績は異常を認めず。

胃透視所見：胃幽門部大彎側に約2cm大の表面平滑な隆起性病変を認めた (Fig. 1)。

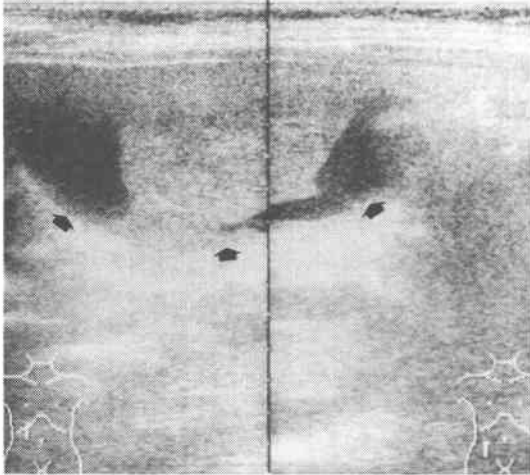
胃内視鏡所見：胃幽門部大彎側に直径約2cmの山田II型の隆起性病変を認めた。表面は正常粘膜に覆われていた。粘膜下腫瘍の診断にて boring biopsy を

Fig. 1 Upper gastrointestinal series showed an elevated lesion along the greater curvature in the pyloric region (arrow)

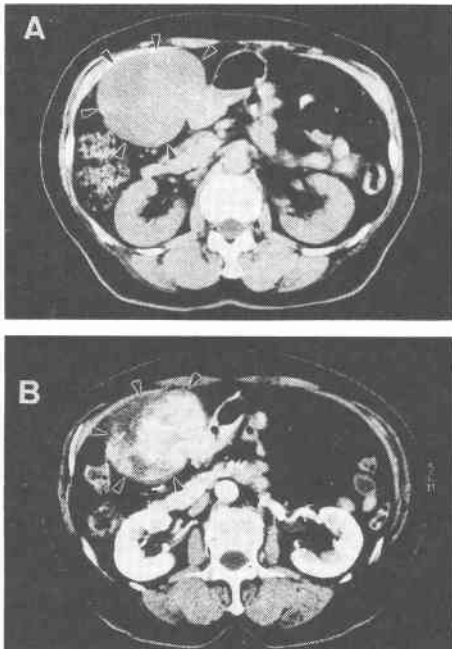


<1993年1月13日受理>別刷請求先：川村 弘之  
〒467 名古屋市瑞穂区瑞穂町川澄1 名古屋市立大学医学部第2外科

**Fig. 2** Abdominal ultrasonography showed a well-demarcated mass. The upper and lower region of the mass were cystic, while the central region was solid (arrow)



**Fig. 3** (A) Plain CT revealed a high density mass with a homogeneous inner structure (arrowheads). (B) On enhanced CT images, the solid central region of the mass was pachychromatic and had a heterogeneous inner structure (arrowheads)



行ったが腫瘍組織は採取されず、病理組織診断は得られなかった。

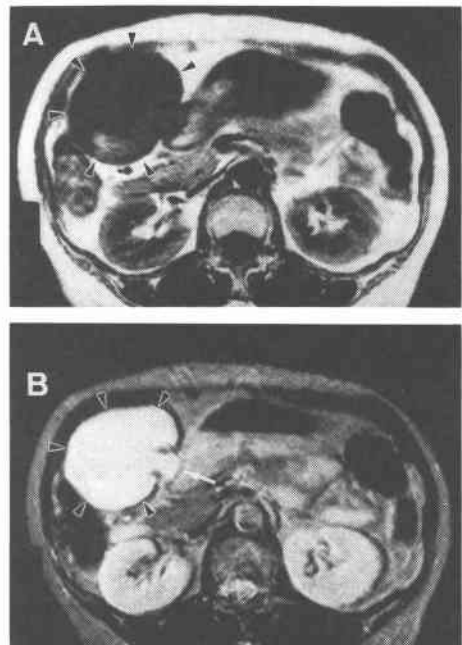
腹部超音波所見：肝下面から十二指腸前面にかけて境界明瞭な11×7×6cmの球形の腫瘍性病変を認めた。腫瘍の上極と下極は嚢胞性で中央部は充実性であった (Fig. 2)。

腹部 computed tomography (CT) 所見：単純 CT で腫瘍は内部構造均一な高吸収域を呈した。造影 CT にて腫瘍中央の充実性部分は内部構造不均一な濃染像を呈した (Fig. 3)。

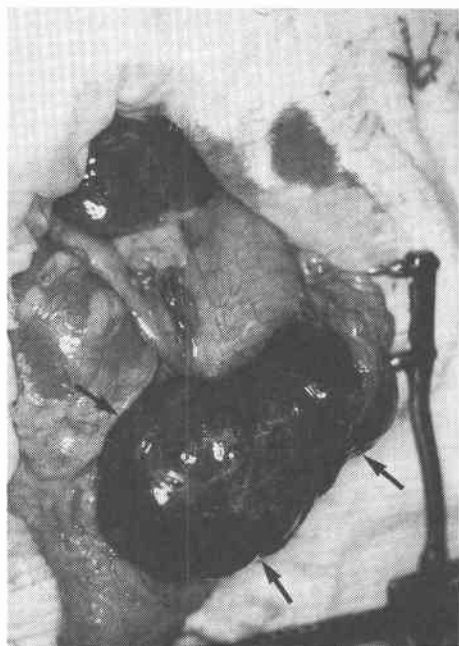
腹部 magnetic resonance imaging (MRI) 所見：腫瘍は T<sub>1</sub>強調像で低信号強度として描出され、T<sub>2</sub>強調像で高信号強度として描出された。また、胃壁内から壁外性に連続発育した壁外有茎発育型の腫瘍の形態が明瞭に描出された (Fig. 4)。

腹部血管造影所見：右胃大網動脈の分枝に拡張した腫瘍血管を認めた。腫瘍の充実性部分は hypervas-

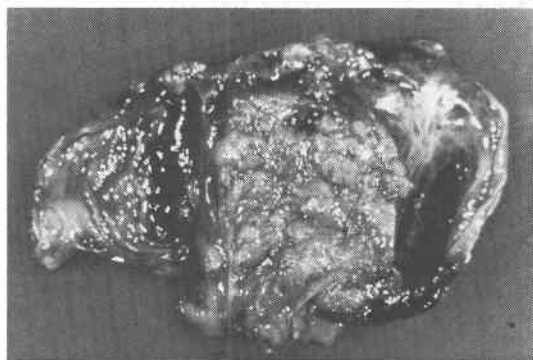
**Fig. 4** (A) On T<sub>1</sub>-weighted MR images, the mass was visualized as a low-intensity areas with a heterogeneous inner structure (arrowheads). (B) On T<sub>2</sub>-weighted MR images, the mass was visible as a high-intensity area with a homogeneous inner structure (arrowheads)  
A pedunculated, extramural growth pattern of the mass was clearly visible (arrow)



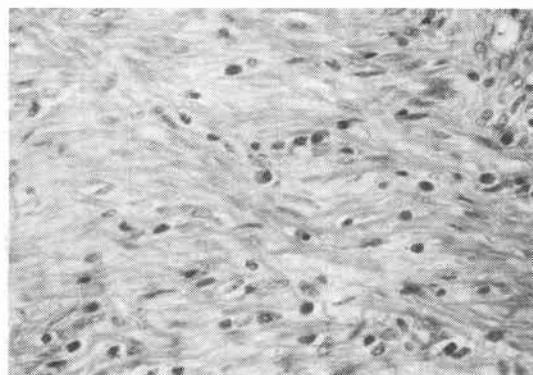
**Fig. 5** On operative findings, the tumor exhibited a pedunculated, extramural progression from the greater curvature of the pylorus (arrow)



**Fig. 6** The removed tumor measured 12×7.5×6 cm. The central region of its cross-section was milky white and solid. The upper and lower poles of the tumor were cystic



**Fig. 7** Histopathologically, the tumor was primarily composed of round cells with abundant eosinophilic cytoplasm which surrounds a centrally located nuclei (HE stain, ×400)



側から壁外性有茎性に発育した手拳大の腫瘤を認めた。周囲臓器への癒着、浸潤はなく、肝転移、腹膜播種、リンパ節腫大は認めなかった (Fig. 5)。腫瘍部辺縁より3cmの距離で胃を楔状切除し腫瘤を摘出した。

切除標本所見：腫瘤は12×7.5×6cm、楕円球形で、断面は中心部が乳白色、膨隆、充実性で、上極と下極が嚢胞性であった (Fig. 6)。

病理組織学的所見：好酸性的の広い細胞質を有する大小不同の円形、または多角形の細胞が認められた。核周囲の透明帯も散見された。核分裂像はほとんど認めず、悪性度の低い平滑筋芽細胞腫と診断された (Fig. 7)。

免疫組織化学的所見：Vimentin(+), Desmin(-), Neuron specific enolase (+), S-100 protein (-)であった。

術後6か月の現在も再発はなく健在である。

#### 考 察

胃平滑筋芽細胞腫の術前診断は困難な場合が多く、これまでの本邦報告例において術前に病理学的診断が得られた症例は220例中12例 (7.1%)とまれである<sup>1)</sup>。その理由は、本症は粘膜下腫瘍の形態を呈する場合が多いため、内視鏡下生検による腫瘍組織の採取が困難な点にある。近年、生検手技の進歩により術前診断率も向上しているが、本疾患は、その臨床症状の約半数は吐下血であり、腫瘍は血行に富むため、生検部からの出血をきたしやすい。自験例においても、組織学的診断目的で boring biopsy を施行したが、生検術後6日目に生検部からの出血をきたし、内視鏡的止血術を

cularで、嚢胞性部分は hypovascular を呈した。

以上の検査成績から、壁外発育型の胃平滑筋肉腫を疑い待期手術を予定していたが、生検部から出血をきたし、2度の内視鏡的止血術後も出血が続いたため、1992年3月23日、緊急手術を施行した。

手術所見：上腹部正中切開にて開腹。胃幽門部大彎

試みたが、再出血したため緊急手術を余儀なくされた。再出血の原因として、自験例では壁外有茎性発育を示し、腫瘍血管が茎部に集中しており、生検部はとくに血行に富んでいること、さらに有茎性壁外発育型腫瘍であるため、体動にて腫瘍が容易に移動し止血部の凝血塊が脱落したことが考えられた。壁外発育型平滑筋芽細胞腫の生検術に際しては出血に対する十分な配慮が必要である。

術前の病理学的診断がえられない場合には臨床的補助診断が重要で、とくに本疾患と類似した病態を呈する平滑筋肉腫との鑑別が問題となる。そこで、平滑筋芽細胞腫220例<sup>1)</sup>および平滑筋肉腫639例<sup>2)</sup>の本邦報告集計例から両疾患の臨床的特徴を検討した。平滑筋芽細胞腫、平滑筋肉腫のいずれも男女比は、約1:1で、好発年齢は50~60歳台と差はない。腫瘍の占居部位は、平滑筋芽細胞腫では噴門部10.2%、胃体部52.6%、幽門部37.2%で、平滑筋肉腫では噴門部60.3%、胃体部24.5%、幽門部7.7%であった。発育形式は、平滑筋芽細胞腫では胃内型58.2%、胃外型18.2%で、平滑筋肉腫では胃内型27.4%、胃外型54.8%であった。胃平滑筋芽細胞腫は、胃平滑筋肉腫と比較して胃体下部に好発し、胃内発育型が多い傾向を認めた。

胃平滑筋芽細胞腫の動脈造影所見に関して、Wolf<sup>3)</sup>は腫瘍は血行に富んでおり、栄養血管の拡張所見が特徴としている。自験例においても腫瘍の栄養血管である右胃大網動脈の拡張像および腫瘍濃染像を認めた。

胃平滑筋芽細胞腫のMRI所見に関しては検索しえたかぎりでは報告例がない。MRIは、空気による artifact がなく、コントラスト分解能が高いため、壁外発育型の消化管腫瘍の局在診断、他臓器浸潤の有無の検索に有用である。自験例においては、MRIで胃壁内から胃壁外への腫瘍の連続性が描出され、胃壁外発育型粘膜下腫瘍の診断が得られた。さらに腫瘍と腫瘍周囲臓器とは明瞭に境界され、術前に他臓器浸潤陰性と診断可能であった。また、腫瘍はT<sub>1</sub>強調像で低信号強度、T<sub>2</sub>強調像で高信号強度として描出され、この所見は血行に富んだ本症の腫瘍の特徴と考えられた。腫瘍内部の嚢胞部および充実性部の性状はUS、CTにて描出可能であった。このように、種々の画像診断を総合的に評価することにより腫瘍の局在診断および質的診断も可能になると考えられた。また、超音波内視鏡は胃の壁層構造の解析が可能で、腫瘍深達度および壁内進展度の診断に有用であり、MRIと同様に、今後の症例の蓄積により本疾患の診断に有用な検査法になりうると

期待される。

病理学的には本症は腫瘍細胞が類円形の胞体を持ち、核周囲に透明帯を有することが特徴である<sup>4)</sup>。組織学的悪性度は一般に、細胞密度、核や細胞質の形態、核分裂像の数により評価されるが、なかでも核分裂像の数が良悪性の判定に有用とされている<sup>5)</sup>。悪性例の頻度に関して、Applemanら<sup>6)</sup>は127例中13例(10.2%)、徳原ら<sup>1)</sup>は220例中17例(7.7%)に転移を認めたと報告しており、低頻度がながら悪性例が認められる。しかし、組織学的悪性度診断が必ずしも容易でない症例も認められるため、このような症例に対しては、術後の再発、転移の可能性を考慮する必要がある<sup>7)</sup>。

免疫組織化学的には、正常な胃平滑筋細胞はDesmin陽性、Vimentin陰性を示すが、腫瘍化すると自験例と同じくDesmin陰性、Vimentin陽性を示すとされる<sup>8)</sup>。本症の発生母地に関しては平滑筋由来であるとする説<sup>9)</sup>が有力だが、他にparaganglioma由来<sup>10)</sup>、血管平滑筋細胞由来<sup>11)</sup>とした報告も認められる。自験例ではNeuron specific enolaseが陽性であり、発生由来に関して興味深い結果であった。

本疾患は、巨大化して出血をきたす可能性<sup>12)</sup>があり、また悪性度診断が困難な場合もあることから、外科的切除の適応となる。

手術術式に関しては、Appelmanら<sup>8)</sup>は腫瘍を含めた楔状切除で十分としている。Abramson<sup>12)</sup>は、腫瘍が単発で小さい時、または壁外型の有茎性腫瘍においては楔状切除が良いとしており、腫瘍が多発または広範囲に胃壁に浸潤した場合には胃切除を勧めている。本症の悪性頻度は約10%に認められており、腫瘍多発例や胃壁への浸潤傾向が強い場合には、広範囲胃切除が必要である。一方、リンパ節郭清に関しては、本症のリンパ節転移率が220例中5例(2.3%)とまれなため<sup>1)</sup>、必ずしも癌に準じたリンパ節郭清は必要ないと考えられる。自験例においては、胃外に有茎性に発育し、胃壁への浸潤傾向がなく、リンパ節腫大も認められなかったため、楔状切除で十分な治癒切除がえられたものと考えられた。

本症の治療には、各種診断法にて術前診断に努め、本疾患の臨床的、組織学的な特徴を十分に把握して手術術式を選択し、術後再発も念頭にいた経過観察が重要である。

## 文 献

- 1) 徳原太豪, 酒井克治, 木下博明ほか: 術前診断しえ

- た巨大な胃平滑筋芽細胞腫の1例と本邦報告220例の検討. 日臨外医会誌 51: 316—321, 1990
- 2) 貞広荘太郎, 大村敏郎, 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
  - 3) Wolf JS: Massive leiomyoblastoma of the stomach. Arch Surg 96: 284—288, 1968
  - 4) Stout AP: Bizarre smooth muscle tumors of the stomach. Cancer 15: 400—409, 1962
  - 5) Lavin P, Haidu SI, Foote FW Jr: Gastric and extragastric leiomyoblastoma. Clinicopathologic study of 44 cases. Cancer 29: 305—311, 1972
  - 6) Appelman HD, Helwig EB: Gastric epithelioid leiomyoma and leiomyosarcoma (leiomyoblastoma). Cancer 38: 707—728, 1976
  - 7) Evans HL: Smooth muscle tumors of the gastrointestinal tract. A study of 56 cases followed for a minimum of 10 years. Cancer 56: 2242—2250, 1985
  - 8) Evans DJ: Intermediate filaments in smooth muscle tumors. J Clin Pathol 36: 57—61, 1983
  - 9) Kay S, Still WJS: A comparative electron microscopic study of a leiomyosarcoma and bizarre leiomyoma (leiomyoblastoma) of the stomach. Am J Clin Pathol 52: 403—413, 1969
  - 10) 今村正克, 木下 博, 中川 享ほか: 胃の bizarre leiomyoma (leiomyoblastoma) の電顕的観察. 癌の臨 20: 472—476, 1974
  - 11) Salazar H, Totten RS: Leiomyoblastomas of the stomach. Cancer 25: 176—185, 1970
  - 12) Abramson DJ: Leiomyoblastoma of the stomach. Surg Gynecol Obstet 136: 118—125, 1973

### A Case of Leiomyoblastoma of the Stomach with Pedunculated Extramural Progression and Marked Cystic Change

Hiroyuki Kawamura, Makoto Kataoka, Yoshiyuki Kuwabara, Yasuyuki Kureyama, Hiroshi Iwata,  
Noriyuki Shinoda, Taketoshi Kashima, Atsushi Satou, Kouji Hattori,  
Kouichirou Nakano and Akira Masaoka

The Second Department of Surgery, Nagoya City University of Medical School

A case of leiomyoblastoma of the stomach that showed an unusual growth pattern is reported. The patient was a 69-year-old female who was admitted with a chief complaint of abdominal mass the size of a fist in the right epigastric region. Ultrasound examination indicated that the mass was cystic in the upper and lower poles and solid in the center. MRI defined a gastric submucosal tumor which had grown beyond the gastric wall. After endoscopic biopsy, bleeding was observed from the biopsy site, and emergency operation was performed. Laparotomy revealed a pedunculated tumor growing extramurally from the pyloric greater curvature. Wedge resection of the stomach, including the mass, was performed. A diagnosis of low grade malignant leiomyoblastoma was made histologically. About 10% of leiomyoblastoma is malignant, and extended gastrectomy is considered to be needed in case of multiple tumors or when the tumor has markedly invaded the gastric wall. However, when the tumor grows as a pedunculated extragastric lesion, no invasion into the gastric wall is observed, and no lymph node enlargement is noted as in our case, wedge resection is considered to be sufficiently curative.

**Reprint requests:** Hiroyuki Kawamura Second Department of Surgery, Nagoya City University of Medical School  
1 Kawasumi, Mizuho-cho, Mizuho-ku, Nagoya, 467 JAPAN