

急速に発育した S 状結腸間膜平滑筋肉腫の 1 例

社会保険埼玉中央病院外科, 同 病理*

前田耕太郎 橋本 光正 片井 均 洪 淳一
山本 修美 細田洋一郎 堀部 良宗*

画像診断上 3 か月前の検査で異常を認めず、臨床経過上約 1 か月の間に急速な発育を呈した S 状結腸間膜原発の平滑筋肉腫の 1 例を報告する。症例は 73 歳の男性で、便秘と腹部膨隆を主訴に来院した。3 か月前に他疾患の疑いで、他院で腹部の精査を受け異常は指摘されなかった。腹部には径約 20cm の腫瘤を触れ、CT および血管造影検査所見より S 状結腸間膜肉腫の診断で開腹した。腫瘍は S 状結腸間膜より直腸後面、周囲臓器にも及び、一部破裂し、3,000ml の血性腹水も認めた。低位前方切除、回腸部分切除、虫垂切除を施行し、腹腔内を洗浄した。腫瘍は 22×17×8cm, 1,750g で、病理組織学的には S 状結腸間膜原発の平滑筋肉腫であった。術後 5 か月目より、肝転移と腹腔内再発を認め 10 か月目に死亡した。腸間膜平滑筋肉腫は予後不良の疾患ではあるが、外科的治療により QOL の改善を認めた症例であると考えられた。

Key words: leiomyosarcoma in the mesentery, leiomyosarcoma with rapid growth

はじめに

腸間膜原発腫瘍は比較的まれな疾患であり、その中でも平滑筋肉腫の報告は少なく、検索しえた範囲では文献上本邦 33 例にすぎない。腸間膜平滑筋肉腫は腹部腫瘍で発見されることが多く、腫瘍の発育進展速度に関しては臨床経過より推測できるのみであり、画像診断にて腫瘍の発育を明らかにした報告はみられない。我々は、他疾患にて 3 か月前に腹部の精査を施行し明らかな異常を認めず、約 1 か月の臨床経過で腫瘍の増大を認めた S 状結腸間膜原発の平滑筋肉腫を経験したので報告する。

症 例

症例：73 歳、男性

主訴：便秘、腹部膨隆

既往歴：肺結核（1965 年）にて内科的治療。1990 年 11 月に複視を自覚し、近医を受診。頭部 X 線写真にて頭頂部の骨肥厚を指摘され、転移性腫瘍の疑いにて、注腸造影検査（1991 年 1 月 31 日）、腹部 CT（1991 年 2 月 5 日、Fig. 1a）、drip infusion pyelography などの検査を受けているが異常はみられなかった。1991 年 4 月 2 日同院で、陰嚢水腫の手術を受けているが、手術時腹部の異常は指摘されていない。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1991 年 4 月中旬より便秘気味になり、腹部膨隆を自覚した。症状が急速に増悪したため、5 月 9 日近医を受診した。CT 検査にて腹部腫瘤を指摘され、5 月 14 日当院を受診、精査治療目的にて入院となった。

入院時現症：身長 168cm, 体重 82kg, 体温 36.6℃, 血圧 166/80mmHg, 脈拍 82/分整で、眼瞼結膜に貧血を認めるも眼球結膜には黄疸はなかった。胸部には異常なく、表在リンパ節の腫大もみられなかった。腹部には、恥骨上縁より臍上 4 横指までの圧痛のない辺縁平滑、弾性硬な腹部腫瘤を触れた。腹囲は 102cm であった。

入院時検査所見：末梢血では、Hb 9.3g/dl と貧血があり、血液生化学では LDH 782IU/l, 血糖値 124mg/dl 以外は、軽度の低栄養を認めたのみで、とくに異常はみられなかった。腫瘍マーカーにも異常はみられなかった。

胸腹部単純 X 線：胸部 X 線検査では、異常はみられなかったが、腹部 X 線検査では、腫瘍の位置に一致して腸管ガス像の圧排が認められた（Fig. 2）。

腹部 CT 検査所見：腎下極より骨盤腔内におよぶ腹部全体を占める径 20cm の腫瘍を認めた。腫瘍の壁は肥厚しており、腫瘍内には壊死を思わせる嚢胞状の部と充実性の部がみられ、両側の水腎症も認めた（Fig. 1b）。

<1993 年 6 月 14 日受理> 別刷請求先：前田耕太郎

〒336 浦和市北浦和 4-9-3 社会保険埼玉中央病院外科

Fig. 1 No pathological findings were pointed out on abdominal CT 3 months ago (a). Abdominal tumor with combination of solid and cystic components was observed this time (b).

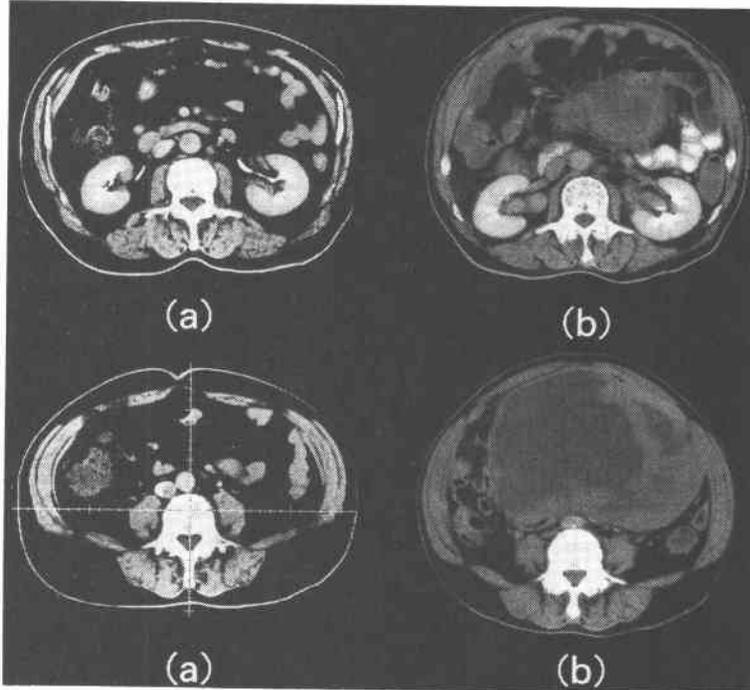


Fig. 2 Spared area of the intestinal gas was revealed in the abdomen on plain X-ray.



腹部超音波検査所見：臍部を中心に巨大な腫瘍を認め、中心部のエコーレベルは肝と同程度であり周辺部にはエコーレベルの高い不整な部がみられた (Fig. 3).

腎盂造影検査：両側の腎盂、腎杯、骨盤部以上の尿管の拡張を認めた (Fig. 4).

下腸間膜動脈造影検査：下腸間膜動脈は拡張しており、腫瘍はS状結腸間膜部に不整な新生血管を有するhypervascularな腫瘍として造影された (Fig. 5).

アイソトープ検査：Gaシンチ検査では、腫瘍部にはGaの集積はみられなかった。以上よりS状結腸間膜肉腫の診断で6月3日手術を施行した。

手術所見：腹腔内には3,000mlの血性腹水を認め、腫瘍はS状結腸間膜より直腸後面に及び、腫瘍の一部は破裂していた。回腸末端、虫垂の一部が腫瘍に癒着していたため、口側は下行結腸の中程までの切除を伴う低位前方切除術と回腸部分切除、虫垂切除術を行い腹腔内を生理食塩水にて洗浄した。

切除標本所見：腫瘍は主にS状結腸間膜に局在し、腸管への浸潤は明らかでなく、大きさは22×17×8cm、

Fig. 3 Ultrasonography of the abdomen revealed the tumor with cystic area and irregular solid mass.



Fig. 4 Drip infusion pyelography showed hydronephrosis of the bilateral kidney and a dilatation of the bilateral ureter above the pelvis.



重量は1,750gで、淡褐色を呈する充実性の部と出血壊死を示す部が混在していた (Fig. 6).

病理組織学的所見：桿状核を有する紡錘形細胞が密に配列し、束状となり交錯し、花むしろ状のパターンを呈していた。また一部では nuclear palisading を

Fig. 5 Inferior mesenteric arteriography revealed a dilatation of the inferior mesenteric artery and a hypervascular tumor with neovascularity.

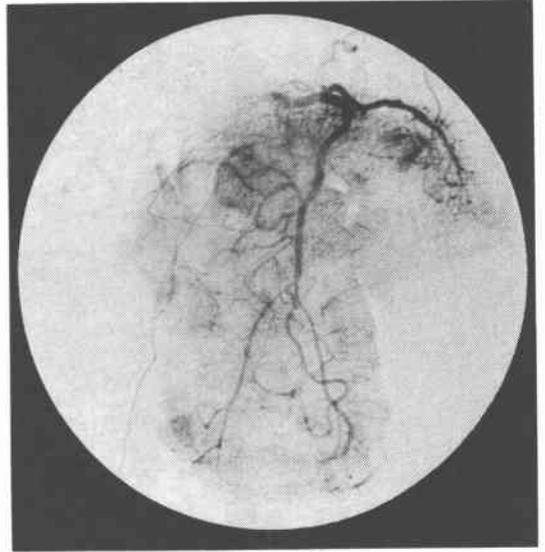
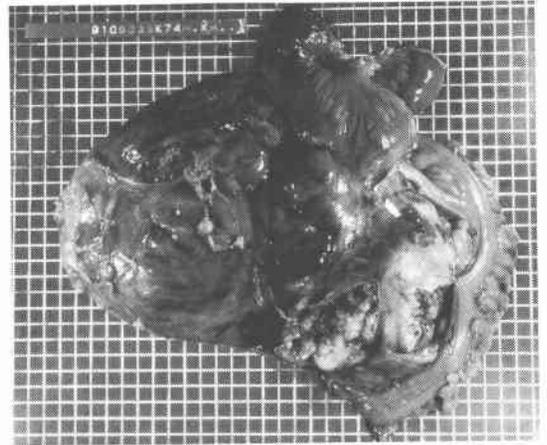


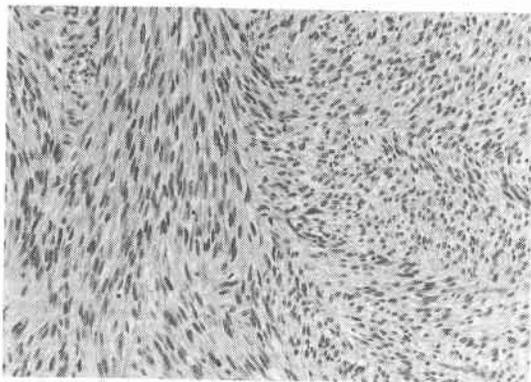
Fig. 6 Sigmoid mesenteric tumor 22×17×8cm in size, 1,750g in weight was excised with the intestine. The tumor consisted of solid component and necrosis with bleeding.



伴っていた (Fig. 7). 核分裂像は400倍の視野で10個以上みられ、S状結腸間膜原発の平滑筋肉腫と診断された。

術後経過：術後14日目に軽快退院し、外来にて経過観察していたが、術後5か月目に、腹部CT検査で多発性の肝転移を認めた。再入院し、アドリアマイシンを用いた塞栓化学療法を施行したが効果がなかった。

Fig. 7 Microscopic findings (HE 100×): Spindle shaped cells with bluntended nuclei formed patterns of interlacing bundle, storiform and herring bone. A high degree of mitotic activity was observed.



患者は元気に外来通院していたが、7か月目には腹腔内全体に腹膜播種も認め術後10か月目に腫瘍死した。

考 察

腸間膜は後腹膜とともに中胚葉性の胎生期体腔上皮より発生しており、後腹膜とは明らかに区別はできない¹⁾、腸間膜腫瘍は、遊離性の腸間膜を有する小腸、横行結腸、S状結腸間膜より発生した腫瘍であり、発生母体は腸間膜内の結合組織、血管、神経、リンパ管であると考えられている²⁾。Szenes³⁾は、腸間膜の両葉にその大部分が包まれるものを腸間膜腫瘍と定義しており、本症例もS状結腸間膜に病変の主体があり、下腸間膜動脈により主に栄養されていたためS状結腸間膜原発の腫瘍と考えられた。

腸間膜腫瘍は転移性のものが多く、原発性は比較的まれであり、そのうち充実性腫瘍は嚢胞性腫瘍の1/2~1/3であると報告⁴⁾されている。腸間膜原発の悪性腫瘍としては、繊維肉腫、リンパ肉腫、脂肪肉腫、細網肉腫、平滑筋肉腫の順に頻度が高く⁵⁾、腸間膜原発の平滑筋肉腫は今回検索しえた範囲でも、本邦の報告例^{24)~27)}は33例とまれな疾患である。

腸間膜平滑筋肉腫の発症年齢は、坂田ら²⁾によると24歳から76歳で平均 57.8 ± 14.5 歳であり、性差はないと報告されている。

発生部位の明らかな28例について集計してみると、6例は空腸、7例は回腸、9例は横行結腸、6例はS状結腸に発生しており、明らかな好発部位はなかった。本例はS状結腸間膜平滑筋肉腫としては本邦報告例

では7例目にあたる。

症状としては特有のものではなく、80%に腫瘍の触知、17%に腫瘍の圧迫症状、さらに20%に周囲臓器への浸潤、自壊による症状があったと報告²⁾されている。

血液生化学所見、腫瘍マーカーでも、平滑筋肉腫に特徴的な所見は明らかにされていない。これまでの報告例の33例を検討してみると、末梢血所見や臨床所見の記載のある13例中11例にHb 8~10g/dl程度の貧血を認めている。症例によっては、貧血の精査で腸間膜肉腫が発見された報告⁶⁾もある。本症例においても、Hbは9.30g/dlであった。腸間膜平滑筋肉腫は、切除標本所見で充実性の腫瘍部と同時に出血、壊死部をほとんどの症例で認めており、貧血はこの出血、壊死巣に起因すると考えられ、中程度の貧血は腸間膜平滑筋肉腫に特徴的な所見といつてよいのではないかと考えられた。

病恟期間の記載のあった12例の報告例のうち、6か月未満のものは6例、6か月より1年未満のものは2例、1年以上のものは4例あり、最短で1か月、最長で1年7か月であった。本例は病恟期間は1か月と最短の症例であり、3か月前の検査でも異常を認めていないことより、急速に発育進展した症例であると考えられた。

腸間膜平滑筋肉腫の術前診断には、腹部CT、超音波検査ならびに血管造影検査が有用である。腹部CT、超音波検査では充実性の部と嚢胞状の部が混在した不均一な腫瘍として描出されることが多い。血管造影検査では各動脈とその分岐の伸展、圧排、開大、広狭不整などが指摘¹²⁾されており、腫瘍はhypervascular massとして造影される場合が多いと報告⁴⁾されている。これらの所見を総合することにより腸間膜平滑筋腫瘍はある程度術前に診断が可能であると考えられた。

治療は外科的治療が唯一の方法であり、一般的に放射線療法や化学療法は無効とされている。本症例においても肝転移に対しアドリアマイシンによる塞栓化学療法を施行したが無効であった。手術としては、これまで腫瘍と浸潤部の合併切除や腫瘍摘出が行われていることが多い。本症例に対しても、S状結腸切除と回腸部分切除、虫垂切除を行った。手術に際しては、腸間膜腫瘍部の腸管ならびに小腸などの合併切除が必要な症例が多いので、手術前に腸管の前処置が必要であると考えられた。

予後に関しては良好とはいえないと報告²⁷⁾されている。平滑筋肉腫は、リンパ行性転移はまれで、肝へ

の血行性転移⁹⁾や腹膜、局所再発を生じることが多いが、積極的な外科的切除により長期生存例も報告⁹⁾¹⁰⁾されている。柳衛らも¹¹⁾、肝転移に対する積極的な外科治療を提唱しており、腸間膜平滑筋肉腫に対しては、患者のQOLを改善する意味でも、原発巣や転移巣に対する積極的な外科治療を試みるべきであると考えられた。

なお、本論文の要旨は、第39回日本消化器外科学会総会(神戸)にて報告した。

文 献

- 1) 榎 哲夫, 山口 巖: 腹膜腔の発生と分化. 木本誠二編. 現代外科学体系. 34巻. 中山書店, 東京, 1971, p133-135
- 2) 坂田雅宏, 大野 徹, 山下義信ほか: 横行結腸間膜平滑筋肉腫の1例. 日臨外医学会誌 52: 1857-1861, 1991
- 3) Szenes A: Uber solide Mesenterialtumoren. Deutsch Z Chir 144: 228-249, 1918
- 4) 田中明隆, 尾関規重, 高橋佳嗣ほか: S状結腸間膜より発生した巨大平滑筋肉腫の1例. 日消病会誌 87: 1258-1262, 1990

- 5) 山本誠己, 勝部有二, 奥 勝次ほか: 原発性腸間膜血管肉腫の1例. 臨外 34: 285-290, 1979
- 6) 中川義基, 高橋忠昭, 寺田和貴ほか: 腸間膜平滑筋肉腫の1例. 消外 10: 1877-1881, 1987
- 7) 藤田好雄, 加藤一吉, 山本洋之ほか: 原発性腸間膜平滑筋肉腫の1例. 手術 39: 1051-1056, 1985
- 8) 早田邦康, 宮本裕一, 白水俱弘ほか: 大・小網および腸間膜原発平滑筋肉腫: 症例報告および文献上の集計. 自治医大紀 7: 119-131, 1984
- 9) 田中承男, 金田悌二郎, 中江 晟ほか: くり返し原発巣の切除を行なった腸間膜平滑筋肉腫の1例. 交通医 44: 172-176, 1990
- 10) 広瀬定徳, 橋端俊彦, 高野雅巳ほか: 14年の経過をとった腸間膜平滑筋肉腫の1例. 道南医学会誌 16: 78-80, 1981
- 11) 柳衛宏宣, 武田泰隆, 藤井祐三ほか: 肝転移を来した間葉系腫瘍の3症例. Oncologia 21: 113-116, 1988
- 12) Diamond AB, Meng CH, Goldin PR et al: Arteriography of unusual mass lesions of the mesentery. Radiology 110: 547-552, 1974

A Case of Leiomyosarcoma with Rapid Growth in the Mesosigmoid

Koutarou Maeda, Mitsumasa Hashimoto, Hitoshi Katai, Junichi Koh, Osami Yamamoto,
Youichirou Hosoda and Yoshimune Horibe*
Department of Surgery and Pathology*, Soical Insurance Saitama Chuo Hospital

A case of rapidly growing leiomyosarcoma in the mesosigmoid is reported. A 73-year-old male was examined in another hospital by abdominal CT and echosonography 3 months previously under suspicion of metastatic brain tumor. No pathological findings were noted at the time. The patient was admitted to our hospital with a month's history of constipation and abdominal mass. The abdominal tumor, 20 cm in diameter, was diagnosed as sarcoma in the mesosigmoid by CT and angiography, and the operation was performed. The tumor, which was located mainly in the mesosigmoid, invaded to the mesorectum, ileum and appendix. A part of the tumor ruptured, and 3000 ml of bloody ascites was observed. Low anterior resection with partial resection of the ileum and appendectomy was performed. The tumor was 22 × 17 × 8 cm in size and 1750 g in weight, and was diagnosed histopathologically as leiomyosarcoma in the mesosigmoid. The patient was discharged uneventfully on the 14th postoperative day. Liver metastases and intraabdominal recurrence were discovered 5 months after the initial operation. The patient died 10 months after the operation in spite of chemotherapy. Leiomyosarcoma in the mesentery is a disease with poor prognosis, but only surgical intervention is considered to be curative and improve the patient's quality of life. Anemia of moderate grade was suggested to be a characteristic finding of leiomyosarcoma from our analysis of literature.

Reprint requests: Koutarou Maeda Department of Surgery, Soical Insurance Saitama Chou Hospital
4-9-3 Kitaurawa, Urawa, 336 JAPAN