

症例報告

術前診断が困難であった食道の巨大な fibrovascular polyp の 1 切除例

兵庫医科大学第 1 外科

竹内 雅春 豊坂 昭弘 中井 謙之
土生 秀作 中村 清昭 黒田 暢一
桑原 幹雄 福田 康文 岡本 英三

症例43歳の男性。主訴は嚥下困難。画像診断では頸部食道から胸部下部食道にわたる径15cmの巨大な食道内に発育する隆起性腫瘍で、生検では悪性所見は得られなかった。しかし、内視鏡上、腫瘤粘膜上に潰瘍形成をみることから、食道癌肉腫と診断し食道癌に準じた手術を施行した。切除標本では、頸部食道から発生した巨大な有茎性ポリープで組織学的には良性の fibrovascular polyp であった。食道の良性腫瘍は比較的多いのだが、中でも本疾患の報告例は、世界で70例程度であり、本邦でも26例にすぎない。また、10cm以上の巨大ポリープに限れば、本症例を含めて3例であった。このようにまれな疾患ではあるが、正確な術前診断をしえなかったため、多大なる侵襲を加えたことに反省を込めて報告する。

Key word: giant fibrovascular polyp of esophagus

緒言

食道腫瘍の多くは食道癌であり良性腫瘍は少ない。良性腫瘍の中では平滑筋腫が多く、食道ポリープはまれである¹⁾。今回我々は、非常にまれな巨大な食道の fibrovascular polyp を経験し、あまりに巨大なことに術前診断を悪性と誤り、胸部食道全摘術を施行した。術前診断の重要性の反省と若干文献的考察を加え報告する。

症例

患者：43歳，男性
主訴：喘下困難

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：生来健康であったが、平成5年9月頃より飲食時嚥下困難感が生じ、近医を受診。上部消化管 X 線造影検査で食道腫瘍を指摘され当院第3内科に紹介された。精査の結果、食道内腔に突出する隆起性病変を認めたため、手術目的にて当科入院となった。体重減少は3週間で5kg認められた。

入院時身体所見：体重53kg，身長176cm，体格，栄養状態は良好。心臓，肺，腹部所見には異常を認めな

かった。

入院時臨床検査成績：一般検血，生化学検査および各種腫瘍マーカーに異常を認めなかった (Table 1)。

上部食道 X 線造影検査：下部食道の拡張が認められ、頸部食道から胸部下部食道まで連続する隆起性病変が認められた。腫瘤は表面は比較的平滑であり、硬化像はなく巨大な粘膜下腫瘍が考えられた (Fig. 1)。

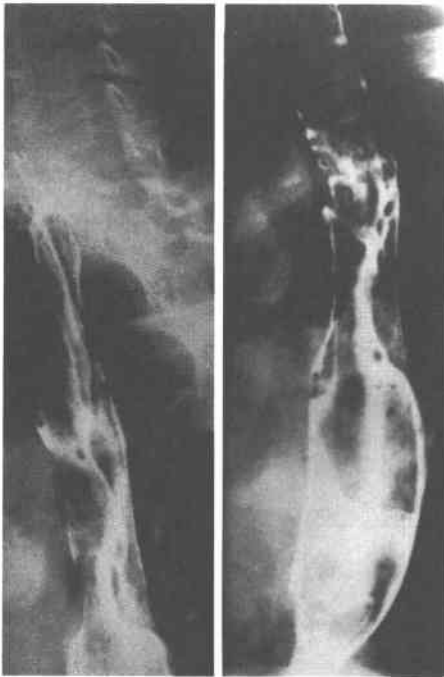
上部消化管内視鏡検査：食道人口部近傍より表面が平滑で正常食道粘膜と同様の色調を呈した隆起性病変

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	67×10 ² /μl	Lip	12 U/L
RBC	428×10 ⁴ /μl	T-Cho	131 mg/dl
Hb	13.0 g/dl	Na	144 mEq/L
Ht	39.2 %	K	4.5 mEq/L
Plt	33.9×10 ⁴ /μl	Cl	106 mEq/L
TP	6.4 g/dl	CRP	6.8 mg/dl
Alb	4.0 g/dl	PT	91 %
Bil-T	0.6 mg/dl	APTT	26.3 sec.
Bil-D	0.2 mg/dl	Fib.	516 mg/dl
GOT	30 KU	HPT	119 %
GPT	46 KU	SCC-Ag	0.8 ng/ml
LDH	255 WU	TPA	16 U/L
ALP	3.9 BLU	CEA	1.5 ng/dl
ChE	154 U/L	CA19-9	7.0 U/L
LAP	236 GRU		
AMY	103 U		

<1995年9月13日受理> 刷別請求先：竹内 雅春
〒663 西宮市武庫川町1-1 兵庫医科大学第1外科教室

Fig. 1 Esophagographs demonstrate a large elevated, smooth surface with filling defect in the entire length of esophagus.



が認められた。隆起性病変は食道胃接合部 (enophago cardiac junction : 以下 ECJ) より約5cm 口側まで連続しており、病変部下端には潰瘍形成が認められた。ヨード染色では潰瘍部分を除いて染色され、粘膜下腫瘍との診断が得られた。2度の潰瘍部の生検の結果は、食道粘膜組織であり悪性所見は得られなかった。内視鏡的には、腫瘍が巨大であり全体像の把握が困難であったため、術前は食道入口部近傍に存在したポリープ茎と腫瘍の食道内での移動に気付かず、巨大食道粘膜下腫瘍と診断した (Fig. 2)。

胸部 computed tomography : 上部食道から下部食道まで連続性に内腔を占める内部均一な low density area を示す腫瘍陰影が認められ、粘膜下腫瘍と診断した。しかし、上部食道レベルの画像および下部食道レベルの画像をみると、腫瘍陰影は食道粘膜面とは離れて内腔に突出する形で認められ、この点から明瞭な食道ポリープ状の腫瘍となっていた (Fig. 3)。

胸部 magnetic resonance computed tomography : T1強調画像では、大動脈前面に上部食道から下部食道にかけて、low density な腫瘍を全周性、連続性に認め、大動脈への浸潤像は認めなかった。T2強調画像では食道内腔を占める強い high density な腫瘍が認められた。これらの所見からは、食道癌は否定的であった。

Fig. 2 (Upper) On upper endoscopy the mass occupied most of the esophageal lumen at a depth of 25cm. (Lower) An ulceration can be seen at the distal end of the mass

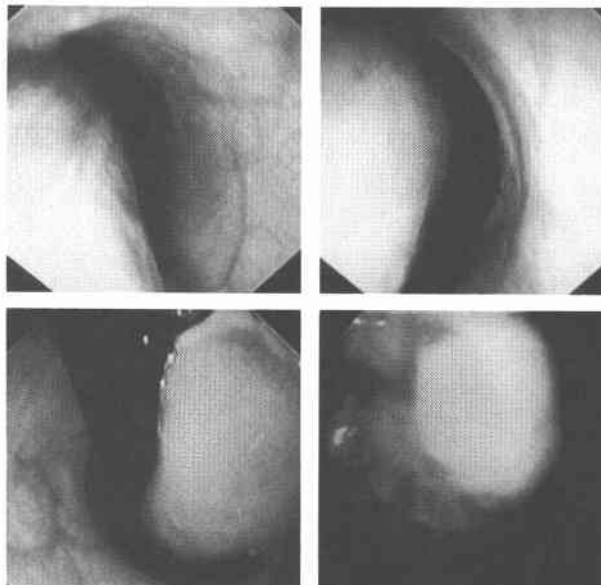


Fig. 3 (A) Computed tomography scan of the upper mediastinum demonstrating an apedunculated tumor in the upper esophagus. (B) Computed tomography scan of the middle mediastinum demonstrating a large tumor with a smooth surface occupying the middle esophagus.

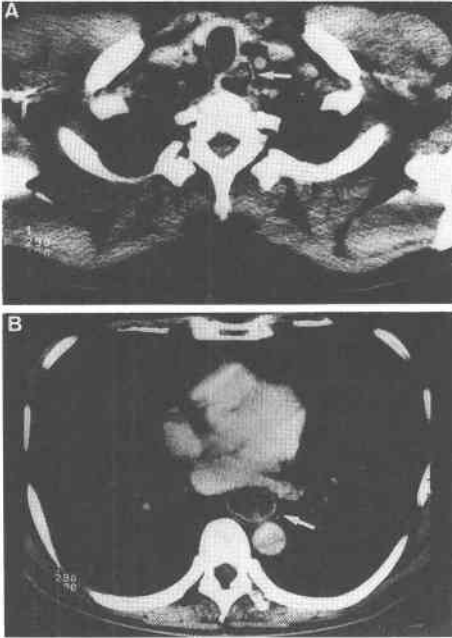
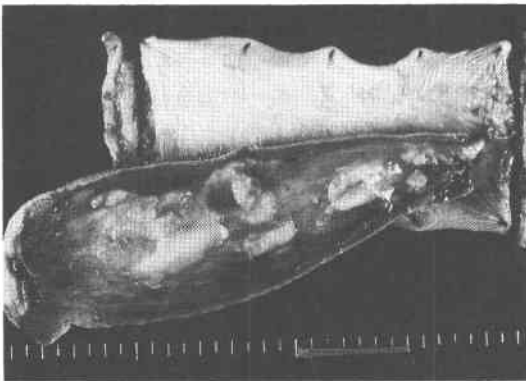
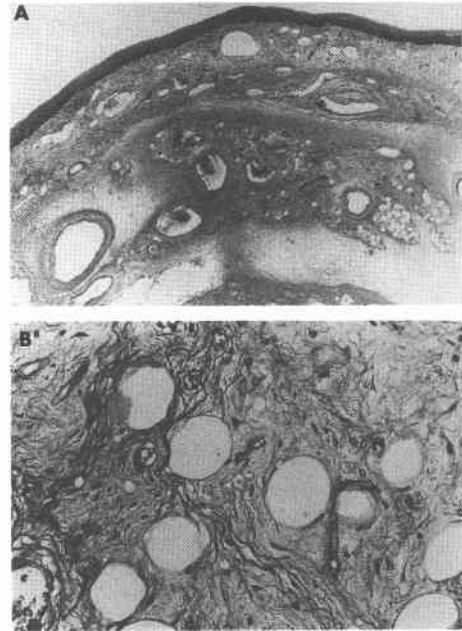


Fig. 4 Gross appearance of the resected specimen. The polyp in 15.0×5.2×4.3cm and has a peduncle measuring 1.0×0.5cm. An ulceration can be seen at the top of the polyp with an adherent clot. The cut surface specimen has a fibrolipomatous appearance.



超音波内視鏡所見：術前は、食道壁5層が描出されているにもかかわらず端子が腫瘍を圧排し端子周囲の

Fig. 5 Microscopic findings of the polyp. (A) Normal squamous cell epithelium covers the surface of the polyp. (B) The polyp consists of fibrovascular connective and fatty tissues.



high echoic な層を粘膜面と誤って判定したため、ポリプ状の腫瘍は考えず通常の粘膜下腫瘍と診断した。

このように術前は、ポリプ状の腫瘍ではなく食道の巨大粘膜下腫瘍と診断した。血液検査所見、生検結果からは、悪性所見は示されなかったが、非常に巨大であり悪性を否定できず、食道の巨大平滑筋肉腫と診断し、平成5年11月5日、右開胸による胸部食道全摘術を行った。再建は胸骨後経路による頸部食道胃管吻合を行った。

術中所見：腫瘍は頸部食道から存在し腫瘍そのものが巨大なため、食道を頸部にて切断することとした。これに先立ち開腹にて胃管を作製した後、頸部操作に移り、頸部食道を十分に露出。腫瘍部分より距離をとって切断した。食道断端には腫瘍の残存は認めなかった。頸部食道と胃管を吻合した後、開胸にて胸部食道を摘出した。摘出された食道は全長にわたり4~5cmに拡張している。触診では、elastic softであったが、可動性はなく術前診断同様に、食道全長にわたる広基性粘膜下腫瘍、すなわち食道巨大平滑筋肉腫と判断した。肺門部リンパ節の腫大は認めたが、反応性腫大と考え

Table 2 Cases of giant fibrovascular polyp of the esophagus reported in Japan (1987-1993)

Case	Author	Year	Age	Sex	Location	Size (cm)	Chief Comp.	Treatment
1.	Nishimura	1987	52	M	upper	18	none	endoscopic polypectomy
2.	Chikuba	1992	33	M	upper	17.2	tarry stool	surgical resection
3.	Our case	1993	43	M	upper	15	dysphagia	surgical resection

られた。

肉眼所見：切除標本を切開して初めて巨大な食道ポリープであることが判明した。大きさは15.0×5.2×4.3cm, 表面は平滑で径5mm, 長さ10mmの茎を有するポリープであった。剖面は充実性で一部黄白色を呈していた (Fig. 4)。

病理組織学的所見：表面は重層扁平上皮に覆われ、腫瘍は粗な繊維組織からなり血管増成が著明であり、少量の脂肪織が含まれていた。異型細胞は認められなかった (Fig. 5)。以上から食道の fibrovascular polyp と診断した。

考 察

食道良性腫瘍は食道腫瘍の中では比較的にまれな疾患である。Enterline ら¹⁾は571例の剖検例で食道良性腫瘍のうち平滑筋腫が310例(54.3%)、ポリープが127例(22.2%)と報告している。本邦では、suzuki ら²⁾の集計によれば、食道良性腫瘍149例中平滑筋腫132例(88.6%)と圧倒的に多く、ついで血管腫7例(4.7%)、嚢胞5例(3.4%)でありポリープは認めなかった。今回報告した fibrovascular polyp を最初に明瞭に定義づけた Stout ら³⁾によれば、「食道内腔に突出した有茎性腫瘍のうち、その表面が重層扁平上皮に覆われ、腫瘍の主体は粘膜下の繊維組織および血管であり、ときに少量の脂肪織を含むことにある。」と定義しており、本症例はこれに相当する。1984年 Mark ら⁴⁾の報告では、fibrovascular polyp は世界で60例ならずであり、1984年以降の文献の検索でも12例^{5)~11)}の報告にすぎなかった。本邦でも竹馬ら¹²⁾の集計による26例にすぎない。さらに Arezzano ら¹³⁾が定義している10cm以上の巨大なポリープに限れば、本邦では西村ら¹⁴⁾の18cm, 竹馬ら¹²⁾の17.2cm, 報告例15cmの3例にすぎない (Table 2)。そのほかは数mm~20mmまでの小さなものであった。本邦での集計でみると、このポリープの特徴はほとんどが中下部食道に位置しているが、

巨大ポリープだけはすべて上部食道に認められることである。巨大化する要因として、Lolly ら¹⁵⁾は好発部位が上部食道であり、しばしば輪状咽頭筋に隣接し、ときに食道筋の蠕動運動で細長く押し出されることにより茎を持ち、大きく垂れ下がると述べている。本症例ではポリープの巨大化に伴い嚥下困難を訴えたにすぎないが、巨大ポリープの場合、ポリープの喉頭への吐出で窒息などの症状が出ることも報告されている¹⁶⁾¹⁷⁾。このように巨大化するまでは臨床症状を伴わない小さな上部食道のポリープであれば、何気なく食道を観察していると見逃される可能性もあり、上部食道に発生するポリープは巨大化した結果診断されることが多いと考えられる。本症例では術前診断を誤ったが、これは今回の内視鏡検査で、食道入口部近傍に茎が存在することで全体像の把握が困難であったことに起因する。この疾患がまれであり、本疾患の存在を把握していなかったことも診断を誤った要因であるが、誤った診断の最大の要因は内視鏡検査と生検結果を十分に検討しなかったことによるものと考えられる。すなわち、2度にわたる生検の結果、悪性所見が得られなかったにもかかわらず、巨大であるということで悪性疾患を否定しえず、また、術中の所見から最終診断をくだすことなく、食道癌肉腫に準じた手術を施行し多大なる侵襲を加えたことは反省すべき点と考える。治療は、小さなポリープは内視鏡的に切除可能であるが、巨大ポリープでも内視鏡的に切除しえたとの竹馬ら¹²⁾の報告がある。内視鏡的切除は、本症例のような巨大ポリープでは茎部分に太い栄養血管が走行することが多く、茎部が食道入口部に近いものでは内視鏡操作が困難なため非常に危険性があると考えられる。本症例のごとく頸部食道に好発する巨大ポリープに対しては経頸部的に頸部食道を切開し、ポリープのみを切除する外科的手術が侵襲も少なく安全であり、本症例では最も適した手術ではなかったと考えられた。

文 献

- 1) Enterline H, Thompson J: Nonepithelial tumors. Edited by. In Pathology of the esophagus. Springer-Verlag, New York, 1984, p165—186
- 2) Suzuki H, Nagayo T: Primery tumors of the esophagus other than squamous cell carcinoma. *Int Adv Surg Oncol* 3: 73—109, 1980
- 3) Stout AP, Lattes R: Tumors of the esophagus. Edited by. In Atlas of tumor pathology. Fascicle 20. Armed Forces Institute of Pathology, Washington DC, p25—32, 1957
- 4) Mark MC, Mandan VK: Giant fibrovascular polyp of the esophagus. *Gastrointest Radiol* 9: 301—303, 1984
- 5) Lawrence SP, Larsen BR, Stacy CC et al: Echoendosonographic and histological correlation of a fibrovascular polyp of the esophagus. *Gastrointest Endosc* 40: 81—84, 1994
- 6) Morin FD, Bret PM, Bret P et al: General case of the day. Fibrovascular polyp of the esophagus. *Radiographics* 12: 845—847, 1992
- 7) Eberlein TJ, Hannan R, Josa M et al: Benign schwannoma of the esophagus presenting as a giant fibrovascular polyp. *Ann Thorac Surg* 53: 343—345, 1992
- 8) Naveau S, Bedossa P, Mallet L et al: Successful ablation of a large fibrovascular polyp of the esophagus by endoscopic Nd: YAG laser therapy. *Gastrointest Endosc* 35: 254—256, 1989
- 9) Timmons B, Sedwitz JL, Oller DW: Benign fibrovascular polyp of the esophagus. *South Med J* 84: 1370—1372, 1991
- 10) Cater MM, Kulkarni MV: Giant fibrovascular polyp of the esophagus. *Gasrointest Radiol* 9: 301—303, 1984
- 11) Patel J, Kieffer RW, Martin M et al: Giant fibrovascular polyp of the esophagus. *Gastroenterology* 87: 953—956, 1984
- 12) 竹馬 彰, 金子行宏, 菅野紀明: 巨大な食道ポリープの1切除例. *臨外* 48: 395—399, 1993
- 13) Avezzano EA, Fleischer DE, Merida MA: Giant fibrovascular polyp of the esophagus. *Am J Gastroenterol* 85: 1485—1490, 1987
- 14) 西村和彦, 松井亮好, 清田啓介: 内視鏡的に切除し得た食道巨大 Fibrovascular polyp の1例. *Gastroenterol Endosc* 27: 1485—1490, 1987
- 15) Lolly D, Razzuk MA, Urschel HC: Giant fibrovascular polyp of the esophagus. *Ann Thorac Surg* 22: 383—385, 1976
- 16) Cochet B, Hohl P, Sans M et al: Asphyxia caused by laryngeal impaction of an esophageal polyp. *Arch Otolaryngol* 106: 176—178, 1980
- 17) Totten RS, Stout AP, Humphreys GH: Benign tumor and cysts of the esophagus. *J Thorac Cardiovasc Surg* 25: 606—622, 1953

A Case of Benign Giant Fibrovascular Polyp of the Upper Esophagus Contrary to Pre-Operative Diagnosis

Masaharu Takeuchi, Akihiro Toyosaka, Yoshiyuki Nakai, Shusaku Habu,
Kiyooki Nakamura, Nobukazu Kuroda, Mikio Kuwahara,
Yasufumi Fukuda and Eizou Okamoto
First Department of Surgery, Hyogo College of Medicine

A 43-year-old man was admitted to our hospital following 5 kg weight loss and 3 weeks of dysphagia. An X-ray examination showed a giant, nodular and elevated tumor measuring 15 cm in length in the upper esophagus. An endoscopy identified a large submucosal tumor with an ulceration at the distal end. An endoscopic biopsy from the ulcerated area showed no malignancy. Carcinosarcoma, however, was suspected because of an extraordinary size of the tumor and also of the ulcer formation. The lesion, therefore, was surgically removed by means of a total thoracic esophagectomy. As a result, the tumor proved to be, histologically, a fibrovascular polyp contrary to our pre-operative diagnosis. A fibrovascular polyp is relatively rare in an esophagus. So far, only about 70 cases have been reported in the world including 26 in Japan. Only two fibrovascular polyps measuring more than 10 cm each have been reported in Japan. Various aspects of our case are described in detail in this report with the reasons for the misdiagnosis. Appropriate therapeutic approach are also discussed.

Reprint requests: Masaharu Takeuchi First Department of Surgery, Hyogo College of Medicine
1-1 Mukogawacho, Nishinomiya, 663 JAPAN