

食道胃接合部に発生した全周性巨大平滑筋腫の1例

岩国市医療センター医師会病院外科

足立 淳 得能 和久 下田 宏二
内山 哲史 村上 卓夫

比較的まれな食道胃接合部に発生した長径13cmの全周性巨大平滑筋腫の1切除症例を経験したので、8cm以上の平滑筋腫本邦報告例14例と共に文献の考察を加え報告した。症例は、45歳のアメリカ合衆国在住の男性パイロットで、吐血、下血を主訴とし、食道胃透視で下部食道の粘膜下腫瘍を疑われ紹介された。上部消化管透視、内視鏡にて、下部食道から噴門部にかけて、両端の腫大したダンベル状の粘膜下隆起病変を認めた。腹部CT、MRIでは、腫瘍は、食道下部から噴門部にかけて存在し、境界明瞭、内部構造均一で、造影効果はなかった。手術は、右開胸開腹による下部食道噴門部切除、空腸間置術を施行した。腫瘍は、いびつな大小不同の弾性硬の卵型の充実性集合体よりなり、大きなものは13.0×8.0×5.0cmで、病理組織検査で平滑筋腫の診断を得た。術後経過順調で、術後15日目に退院し、現在パイロットに復職している。

はじめに

食道胃接合部に発生する平滑筋腫は、比較的まれであり、その治療は、食道胃接合部が low esophageal spincter を持ち、逆流防止機構として、重要な役割を担うことを考慮に入れて対処する必要がある。今回、我々は食道胃接合部に発生した長径13cmの全周性巨大平滑筋腫の1切除症例を経験したので、長径8cm以上の平滑筋腫本邦報告例14例と共に、若干の文献の考察を加え報告する。

症 例

症例：45歳、男性、アメリカ合衆国在住のパイロット

主訴：吐血、下血

家族歴：父 胃癌、母 肝臓癌

既往歴：特になし。

現病歴：平成11年7月頃、下血を認めたが放置していた。10月8日、吐血が有り、近医を受診し、食道胃透視で下部食道の粘膜下腫瘍を疑われ、紹介された。

入院時現症：身長172cm、体重81kg、体格、栄養良好であった。来院時は、特に愁訴はなかった。頸、胸、腹部には腫瘍を触知しなかった。表在リンパ節の腫脹はなく、四肢の浮腫も認めなかった。

臨床検査所見：RBC 415万/mm³、Hb 9.6g/dl、Ht

<2001年6月26日受理>別刷請求先：足立 淳
〒740 0021 岩国市室の木町3 6 12 岩国市医療センター医師会病院

32.7%、T-cho 251mg/dl と低球形低色素性貧血と高脂血症を示す以外は異常なかった。腫瘍マーカーも CEA、ScC-Ag、SIL-2R、NCC-ST-439は正常であった。

上部消化管透視所見：下部食道から胃体上部小彎側にかけて、数個の境界明瞭な隆起性病変があり、bridging fold も認めた (Fig. 1)。

食道胃内視鏡所見：上切歯列より32cmの食道下部から噴門部にかけて、ルゴール好染性の両端の腫大したダンベル状の隆起性病変を認めた (Fig. 2)。胃側腫瘍の生検は、胃炎のみであった。

腹部CT所見：食道下部から噴門部にかけて、10×10×6mmの境界明瞭な、エンハンスされない腫瘍を認めた (Fig. 3)。

腹部MRI所見：腫瘍は、T1強調画像では、肝、筋肉と iso intensity に (Fig. 4)、T2強調画像では、low intensity にやや不均一に抽出された。

ガリウムシンチグラフィ所見：異常集積像は認めなかった。

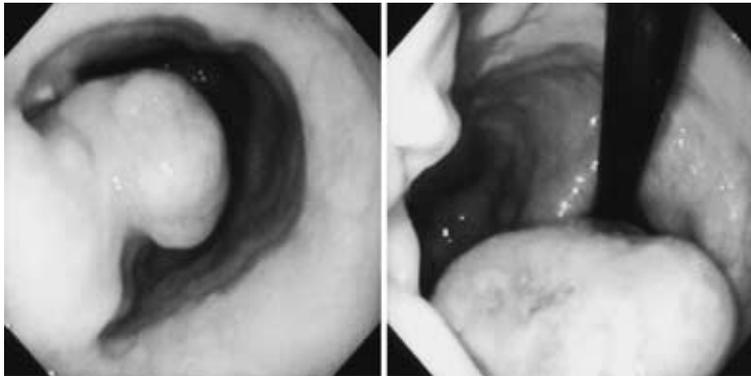
以上より、粘膜下腫瘍は、ガリウムシンチ陰性、SIL-2R 陰性、また、巨大であるにもかかわらず、潰瘍形成も内部壊死も認められないことより平滑筋腫の疑いの診断で手術を施行した。

手術所見：周囲リンパ節の腫脹はなく、腫瘍は、噴門部を中心に食道裂孔より後縦隔に一塊に存在していた。境界は、明瞭で、周囲組織との癒着は、軽度で剥離は容易であった。しかし、腫瘍は巨大で、経食道裂

Fig. 1 AUGI film showed a few elevated lesions with birdging fold in the esophago-cardiac region.



Fig. 2 Endoscopy showed a dumbbell-shaped submucosal elevated lision in the esophagocardiac region.



孔アプローチのみでは切除困難で、右開胸を加え下部食道胃噴門部切除、空腸間置術を施行した。

切除標本：腫瘍は、下部食道から胃噴門部にかけての全周性の粘膜下腫瘍であり、いびつな大小不同の弾性硬の卵型の充実性集合体よりなり、大きなものは130×80×50mmあった(Fig. 5 upper)。胃側に糜爛を認めるのみで、食道粘膜、胃粘膜はほぼ正常であった。剖面は、灰白色、充実性で、卵円形に分葉していた(Fig. 5 lower)。

病理組織所見：固有筋層部に腫瘍の形成が見られ、平滑筋に類似した紡錐形の腫瘍細胞が柵走増生していた(Fig. 6)。SMA染色、desmin染色陽性、NSE染色、

CD34染色、S-100染色は陰性であった。核分裂像に乏しく、核異型がないことより平滑筋腫の診断であった。術後経過順調で、術後15日目に退院した。

考 察

食道胃接合部に発生した平滑筋腫の治療は、良性疾患であるがゆえに、最大の安全性と最小の侵襲、さらには術後の良好な quality of life の維持を基底に、食道胃接合部が low esophageal spincter を持ち、逆流防止機構として、重要な役割を担うことを考慮に入れて、対処する必要がある。

平滑筋腫の手術適応について、島津ら¹⁾は、1) 無症状でも悪性を否定しえない径 3cm 以上の腫瘍、2) 腫

Fig. 3 CT showed a well-demarcated homogeneous mass circumfused the esophageal lumen in the esophagocardiac region.

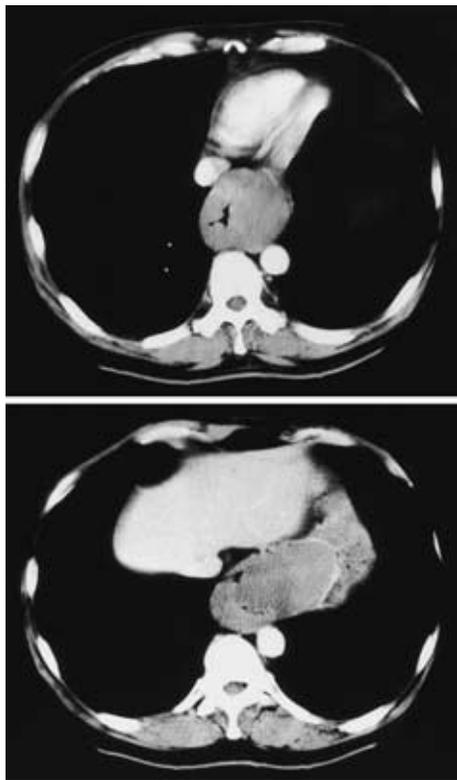


Fig. 4 T1 weighted MRI (coronal section) showed a isointensity mass in the esophagocardiac region.

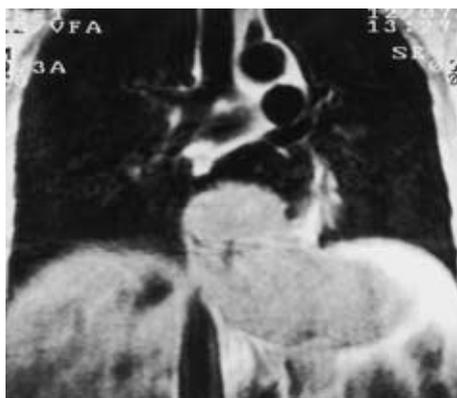


Fig. 5 Resected specimen. The tumor consisted of elastic, hard and oval solid masses of all sizes, large ones measuring 13.0 × 8.0 × 5.0cm.

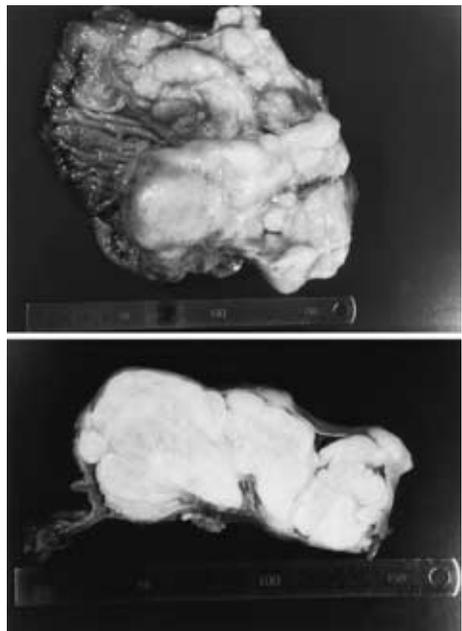
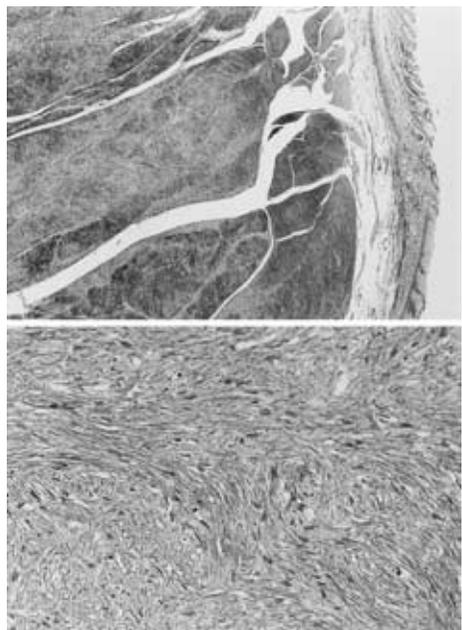


Fig. 6 Microscopic findings. Tumor cells similar to smooth muscle extended in the tunica muscularis propria (upper. H.E × 5, lower. H.E × 50)



瘍による食道閉塞症状をもつもの 3) 悪性腫瘍や手術療法を必要とするその他の疾患に併存するもの、とし

ている。また、吉田ら²⁾は、食道胃接合部平滑筋腫の手術適応について、1) 無症状でも悪性を否定しえない径3cm以上の腫瘍、2) 腫瘍による食道閉塞症状をもつもの、3) 腫瘍が、周囲臓器に対して、圧迫症状を示すもの、4) 悪性腫瘍や手術療法を必要とするその他の疾患に併存するものとしている。しかし、3cm未満でも、頂上に潰瘍形成しているものでは、悪性の可能性が高く、突然の大量出血をみることもあるので手術を行うべきであるとする意見³⁾もある。

手術に際しての核出の適応については、Bellinazzoら⁴⁾は、イヌで粘膜が耐えうる筋層の切除限界は7~8cmとしており、Dillowら⁵⁾は、腫瘍の長径が8cm以下は核出の適応としている。一方、切除については、Seremetisら⁶⁾は、長径8cm以上を切除の適応としている。また、小林ら⁷⁾は、1) 長径8cm以上のもの、2) 輪状に食道をとりかこむもの(半周以上)、3) 粘膜と密に癒着し剥離困難なもの、4) 他病変の合併(食道癌、憩室、裂孔ヘルニア)を挙げている。一方、吉田ら²⁾は、1) 径が大きな腫瘍(長径10.0cm以上)、2) 腫瘍が全周性に発育したもの、3) 術中肉眼および病理組織所見で悪性が疑われるもの、4) 腫瘍が周囲臓器と密に癒着し、剥離操作が困難だったり、剥離操作中に大きな偶発的粘膜損傷を生じた場合、5) 腫瘍表面粘膜に糜爛や潰瘍を伴うもの、6) 腫瘍が食道胃境界部に発生し、半周以上のものおよび多発性のもの、7) 腫瘍が馬蹄型またはドーナツ型で食道を輪状に半周以上とりまいている場合、8) 他病変の合併例(食道癌、大きな憩室、臨床症状を伴う著明な食道裂孔ヘルニア、その他)としている。

そこで、今回我々は、調べた自験例を含めた食道胃接合部の平滑筋腫の本邦報告例39例の内、長径8cm以上のもの15例について検討を加えた。

年齢については、7歳から49歳までで、30~40歳代に多く、性別については、男性7人、女性7人、不明1人であり、長径3cm以下の食道胃接合部平滑筋腫の場合⁸⁾とあまり変わらず、腫瘍の大きさと発病年齢、性別は関係ないように思われる。

主訴については、接合部筋腫のうち併存疾患を有する食道裂孔ヘルニア2例、食道憩室1例、不明2例を除く10例について検討してみると、嚥下障害3例、心窩部痛、上腹部痛2例、咽頭不快感1例、吐血1例、無症状3例であった。腫瘍長径が8cm以上と大きいのに関わらず、無症状のものが3例存在するのは、肉腫などの悪性疾患と違い良性疾患の1つの特徴であると

思われる。本症例の吐血、下血の原因は、胃の糜爛からの出血が考えられた。

術前診断については、確診例はなく、平滑筋腫(疑)3例、平滑筋腫、または肉腫1例、粘膜下腫瘍6例、良性腫瘍2例、食道裂孔ヘルニア2例、横隔膜ヘルニア1例となっている。腫瘍の発育が、粘膜下を主座とするため、普通の生検法で確定診断を得るのは、難しく、粘膜剥離生検法、massive biopsy、有棘穿刺生検法などがとられることがあるが、出血、穿孔などの合併症の危険もあり、あまり一般的とは言えない。消化管透視、内視鏡、CT、MRI、EUS(endoscopic ultrasonography)などの各種画像診断法、腫瘍マーカーなどを駆使し、総合的に診断する必要があると思われる。本症例は、SIL-2R低値、ガリウムシンチ陰性、CT、MRI、腹部超音波検査で均一画像を呈すること、巨大であるにもかかわらず潰瘍形成、壊死形成が認められないことにより、術前診断を平滑筋腫の疑いとした。また、粘膜下腫瘍は、術中迅速診断でも確定診断がつきにくく、本症例では、その結果の如何に関わらず、施行術式の変更がないと思われたため行わなかった。

治療に関しては、すべてなんらかの手術が施行されており、その内訳は、下部食道胃噴門部切除+食道胃吻合術5例(うち1例は胃管吻合)、下部食道胃噴門部切除+空腸間置術3例、核出術3例(うち1例はfundoplicationを付加)、胸部食道全摘+胸骨後食道胃吻合術1例、下部食道胃全摘+食道空腸Roux-en-Y吻合術1例、不明2例である。最近では、下部食道胃噴門部切除+空腸間置術が施行されている。核出術がなされた3例の内2例は、腫瘍の幅が2.0cmと細く、核出術が可能であったと思われる。本症例は、腫瘍が全周性で、核出術は不可能であり、巨大で、上縁が中部食道にかかり、経食道裂孔アプローチのみでは、困難であり、パイロットという職業のことも考え、横隔神経や横隔膜の損傷を避けるため右開胸を加え、下部食道胃噴門部切除+空腸間置術を施行した。術後15日目に退院し、現在元気に元のパイロットに復職している。

本論文の要旨は第55回日本消化器外科学会総会(2000,宮崎)にて発表した。

文 献

- 1) 島津久明,小堀嶋一郎,団野 誠ほか:食道平滑筋腫と平滑筋肉腫 自験9例の報告と本邦文献上報告例の分析. 日外会誌 84:355-368,1983
- 2) 吉田晃治,才津秀樹,野中道泰ほか:食道胃境界部に発生した平滑筋腫の1例. 日臨外医会誌 48:

- 226 234, 1987
- 3) 笹子三津留, 片井 均, 佐野 武ほか : 胃平滑筋腫瘍の治療法の選択 . 外科的治療 . 胃と腸 30 : 1169 1174, 1995
- 4) Bellinazzo P, Ferraboschi P, Ambrosini A : Investigation of the survival and function of segments of the esophagus deprived of their muscular layer. *Chir Ital* 11 : 55, 1956
- 5) Dillow BM, Neis DD, Sellers RD : Leiomyoma of the Esophagus. *Am J Surg* 120 : 615 619, 1970
- 6) Seremetis MG, Lyons WS, Deguzman VC et al : Leiomyoma of the esophagus. An analysis of 838 cases. *Cancer* 38 : 2166 2177, 1976
- 7) 小林康人, 勝見正治, 河野暢之ほか : 食道平滑筋腫の3例 本邦264例の分析 . 日臨外医学会誌 42 : 169 176, 1981
- 8) 佐藤哲郎, 野口 剛, 平岡善憲ほか : 食道胃接合部平滑筋腫の1例 . 外科診療 38 : 1341 1345, 1996

A Case of Circular Giant Leiomyoma in the Esophagocardiac Junction

Atsushi Adachi, Kazuhisa Tokunoh, Kouji Shimoda,
Tetsuji Uchiyama and Takuo Murakami
Department of Surgery, Iwakuni Medical Center Hospital

We report a case of circular giant leiomyoma 13 cm in diameter in the esophagocardiac junction, and review the literature and 14 cases more than 8 cm in diameter in Japan, for which resection was indicated. A 45-year-old male US-resident pilot with hematemesis and melena was admitted to our department because upper GI series revealed a submucosal tumor in the lower esophagus. Endoscopy revealed a dumbbell-shaped elevated submucosal lesion from the lower esophagus to the cardiac region. On abdominal CT and MRI, the tumor showed a well-demarcated homogeneous pattern and no contrast effect. Under right thoracotomy and laparotomy, esophagocardiac resection was conducted with reconstruction by jejunal transfer. The tumor consisted of elastic, hard, and oval solid masses of all sizes, the largest measuring 13.0 × 8.0 × 5.0cm. A diagnosis of leiomyoma was made based on histopathological examination. He was discharged on postoperative day 15 and has gone back to work as a pilot.

Key words : leiomyoma in the esophagocardiac junction, surgical therapy, operation method

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 34 : 1591 1595, 2001]

Reprint requests : Atsushi Adachi Department of surgery, Iwakuni Medical Center Hospital
3 6 12 Muronoki, Iwakuni, 740 0021 JAPAN