

胆嚢原発平滑筋肉腫と早期胃癌の同時性重複癌の1例

福山市民病院外科, 岡山大学医学部保健学科*

石井 辰明 渡辺 和彦 金 仁洙 室 雅彦
宇田 憲司 井谷 史嗣 金子 晃久 佐々木 寛
高橋 聖之* 成末 允勇

胆嚢原発の平滑筋肉腫はまれでありこれまで英文 21 例, 邦文 31 例の文献報告を見るに過ぎない。胃癌との同時性重複癌は我々が検索した範囲では本症例が初めてである。症例は 80 歳, 女性で主訴は右季肋部痛。術前検査にて胆嚢内に結石と, 胆嚢底部に腫瘤を認めた。MRI 検査では周囲筋組織と比較し T1 強調像にて等信号, T2 強調像にて高信号に描出され胆嚢癌を疑った。また, 胃下部小彎に早期胃癌を合併しており, 開腹下幽門側胃切除術と肝床合併切除を伴う胆嚢摘出術, リンパ節郭清を施行した。病理組織学的検索にて早期胃癌を合併した胆嚢原発の平滑筋肉腫と診断した。術後 1 年 9 か月の現在再発は認めていない。

はじめに

胆嚢原発平滑筋肉腫は比較的まれな疾患であり英文報告例は 21 例, 本邦報告例は自験例を含め 32 例に過ぎない。今回, 我々は胆嚢結石症による疝痛発作で発症し, 胆嚢原発平滑筋肉腫に加え, 上部消化管造影にて早期胃癌が発見された同時性重複癌症例を経験したので文献的考察を含め報告する。

症 例

患者: 80 歳, 女性

主訴: 右季肋部痛

既往歴: 37 歳時に胞状奇胎にて子宮全摘術

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 2000 年 2 月 18 日, 右季肋部痛にて近医受診し腹部超音波検査にて胆嚢結石と胆嚢底部に腫瘤を指摘され, 3 月 6 日紹介入院となった。

入院時現症: 身長 146cm, 体重 40kg, 貧血, 黄疸はなく, 腹部は平坦軟で右季肋部に軽度の圧痛を認め, 下腹部正中に手術痕を認めた。腫瘤は触知しなかった。

入院時血液生化学検査: 白血球数 4,900/ μ l, CRP 0.1 mg/dl, T-Bil 0.7mg/dl, GOT 21IU/dl, GPT 10IU/dl, ALP 137IU/L と異常なく, 腫瘍マーカーも CEA 1.8ng/ml, CA19 9.8U/ml, AFP 10ng/ml と正常範囲内であった。

腹部超音波検査: 胆嚢底部腹腔側に肝実質と等エコーで乳頭状に胆嚢内腔に突出する腫瘤, および結石陰影を認めた (Fig. 1)。

CT 検査: 胆嚢腫瘍は肝実質と等 density に描出され胆嚢壁の不整はなく, 造影検査では内部不均一な濃染を認めた (Fig. 2)。

MRI 検査: 胆嚢腫瘍は周囲筋組織と比較し T1 強調像では等信号に, T2 強調像では軽度高信号に描出され, 特に T2 強調像で周囲胆汁とのコントラストにより明瞭に描出された (Fig. 3)。

上部消化管内視鏡検査: 胃下部小彎に fold の集中と周囲の隆起を伴う表面陥凹性病変を認めた。生検にて group V・高分化型腺癌と診断された (Fig. 4)。

ERCP 所見: 胆嚢は描出されず, 胆管浸潤像は認めなかった。

以上の所見より, 胆嚢癌と早期胃癌の同時性重複癌と診断し開腹下幽門側胃切除術, 肝床合併切除を伴う胆嚢摘出術および D2 リンパ節郭清を施行した。

切除標本肉眼所見: 胆嚢底部腹腔側に 3.5×3.0×3.0 cm 大の垂有茎性で乳頭膨張型の腫瘍と, 5.0×2.7cm 大のコレステロール結石を認めた。胃下部小彎に表在型 (IIa + IIc 型) の 3.3cm×3.0cm 大の胃癌を認めた (Fig. 5)。

病理組織学的所見: 胆嚢の腫瘍は, 多形性に富み異型の強いクロマチンに富む核を有する紡錘形の細胞が束状に増殖し, 不規則に錯綜する像が認められた (Fig. 6)。免疫化学的検査では Desmin と alpha smooth mus-

<2002 年 1 月 30 日受理> 別刷請求先: 石井 辰明
〒721 8511 福山市蔵王町 5 23 1 福山市民病院外科

Fig. 1 Ultrasonography showed a gallstone and a tumor in the gall bladder.

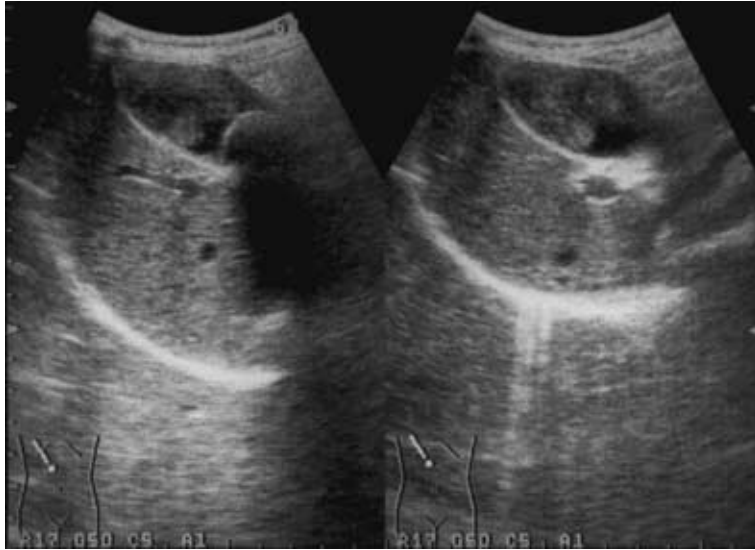
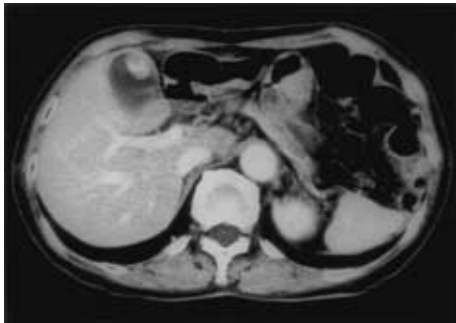


Fig. 2 Computed tomography revealed heterogeneously enhanced papillating tumor protruding into the lumen of the gall bladder.



cle actin (α -SMA) が陽性, S-100 が陰性であり, 胆嚢原発の平滑筋肉腫と診断した. 胆嚢癌取扱い規約によると, 乳頭膨張型, 進達度 mp, hinf₀, H₀, binf₀, pv₀, a₀, P₀, n₀, M(-), St(+), chol, t1, Comprehensive stage I, 根治度 A であった. 胃の同時性重複癌は胃癌取扱い規約によると, L, less, 0 型 IIa + IIc)T1(SM), N₀, H₀, P₀, CY₀, M₀, fStage IA であり根治度 A であった.

術後経過: 特に合併症なく術後 28 病日に退院し術後 1 年 9 か月の現在無再発生存中である.

考 察

胆嚢原発の肉腫は, 胆嚢原発悪性腫瘍の内約 1.4% をしめるに過ぎず, 組織学的分類は平滑筋肉腫が最も多く, 他に癌肉腫, 紡錘形細胞肉腫, 線維肉腫などがある¹⁾. 胆嚢原発平滑筋肉腫は 1904 年 Landsteiner が最初に報告²⁾したが, Medline で検索した結果これまでに英文で 21 例¹⁾⁻⁷⁾, 本邦では自験例を含め 32 例の報告⁸⁾⁻⁹⁾があるに過ぎない. 1998 年に Zeigler³⁾は英文報告例の集計を報告しているが, これによれば平均年齢は 56 歳で胆嚢癌の 70 歳に比べ若く, 性差は男女比が 1:5 と女性に多く, 胆石を高頻度に合併していた. 症状は右上腹部痛, 発熱, 黄疸, 腫瘤触知など胆道系の症状と体重減少など悪性疾患に伴う症状で特異的なものはないが, 胆嚢癌に比べ症状発現と進行が早いとされる.

術前診断は困難であり, 多くは切除標本や屍体解剖によりなされ予後不良である.

本邦報告例の集計を Table 1 に示すが平均年齢が高齢である他はおおむね同様の結果であった.

画像診断では, MRI 所見は他に報告がなく, 本報告が最初であるが, 周囲筋組織と比較し T1 強調画像にて等信号に, T2 強調画像では高信号に描出された. 胆嚢以外では膵臓¹⁰⁾, 上顎洞¹¹⁾, 消化管¹²⁾ 原発平滑筋肉腫などの報告があるが何れも同様の所見であった.

ただし, 他の画像診断においても, 通常の胆嚢腺癌と比べ平滑筋肉腫に特異的な所見は報告されておら

Fig. 3 MRI showed intermediate intensity mass in T1 weighed image and high intensity mass in T2 weighed image well contrasted with bile juice.

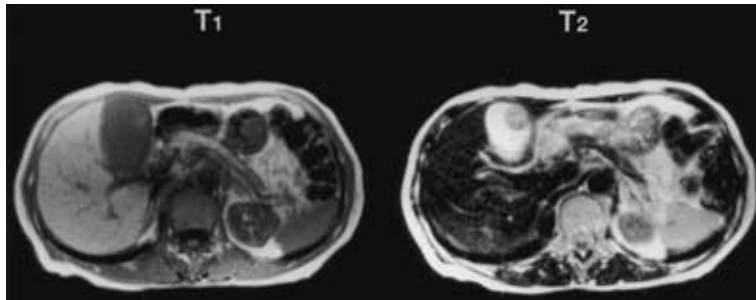


Fig. 4 Gastrointestinal fiberoscopy showed early gastric cancer at antrum.

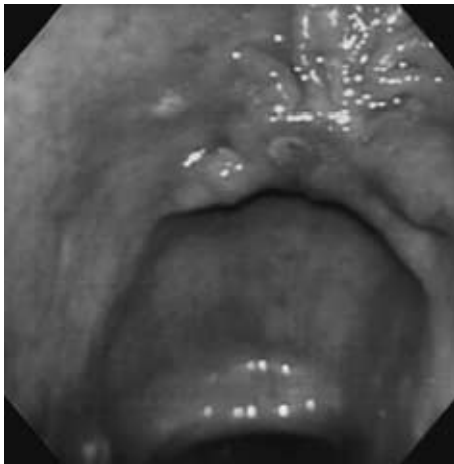


Fig. 5 Macroscopic view of the resected specimen of gallbladder : A protruding tumor into the lumen of gallbladder and a cholesterol stone were found.

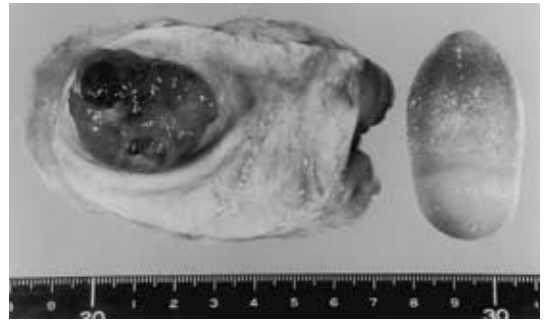
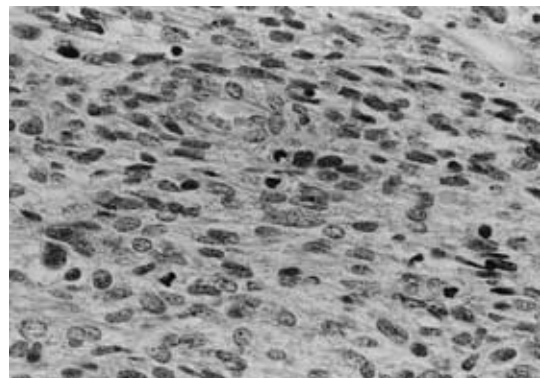


Fig. 6 Pathologic examination showed tumor nests composed of spindle-shaped cells with presence of mitotic figures.(H.E. × 400)



ず、画像での質的な鑑別診断は困難であると考えられる。しかし、本疾患が胆石症の合併が多く超音波検査で音響陰影により腫瘍が描出されず、また ERCP で胆嚢が描出されない可能性も考えれば、本症例のように胆石症の術前検査としての MRI ,MRCP 検査は腫瘍の存在診断を行う上でも重要と考えられる。

確定診断は組織学的になされるが、免疫染色による desmin , vimentin , smooth muscle actin , smooth muscle myosin などの平滑筋細胞骨格蛋白の証明が重要である。ただし、ケラチンが陽性であったとの報告³⁾もあり注意が必要である。

治療は化学療法や放射線照射の有用性が示されていない以上、外科的切除が原則であるが、高い生物学的悪性度により予後は不良である³⁾。長期生存例の報

告¹³⁾ではやはり早期に周囲臓器を含めた en block な切除を推奨している。本症例は胆道癌取扱い規約によれ

Table 1 Primary leiomyosarcoma of the gallbladder(Reported 32 cases in Japan)

age	mean : 67.2 years(41 ~ 83 years)	
		cases(%)
sex	male female	11(34) 21(66)
cholelithiasis	positive negative	15(47) 17(53)
preoperative diagnosis	carcinoma of gall bladder cholelithiasis cholecystitis sarcoma of retroperitoneum carcinoma of pancreas head carcinoma of bile duct leiomyosarcoma of gallbladder unknown	13(41) 3(9) 2(6) 2(6) 1(3) 1(3) 1(3) 9(28)
operation	cholecystectomy cholecystectomy + resection of liver cholecystectomy + resection of transverse colon internal or external biliary drainage no operation or exploratory laparotomy unknown	9(28) 8(25) 2(6) 2(6) 10(31) 1(3)
prognosis	autopsy dead within 1 year dead 8 year after operation alive : follow up period less than 1 year 1 year 2 years 3 years unknown	8(25) 11(34) 1(3) 3(9) 3(9) 1(3) 1(3) 4(13)

ば治癒切除となるが、観察期間が1年9か月と短く今後の経過観察を要すと考えられる。

胃と他臓器の重複癌の頻度は3.6~10.7%であり消化器系癌の合併が多いとされる¹⁴⁾が、胆嚢平滑筋肉腫と胃癌との重複癌は我々が検索した結果、他に報告がなく英語文献を含め本症例が初めてである。

本症例は胆石症による疝痛発作にて発症し、術前検査にて同時性重複癌が発見されたが、当然のことながら良性疾患の治療においても悪性疾患の合併の可能性を考えておくことが重要であると考えられた。

文 献

- Willen R, Willen H : Primary sarcoma of the gallbladder. A light and electronmicroscopical study. Virchows Arch Pathol Anat 396 : 91 102, 1982
- Landsteiner K : Ueber das Sarkom der Gallenblase. Wien Klin Wochenschr 17 : 163 165, 1904
- Zeig DA, Memon MA, Kennedy DR et al : Leiomyosarcoma of the gallbladder. Acta Oncol 37 : 212 214, 1998
- Newmark H, Kliewer K, Curtis A et al : Primary leiomyosarcoma of gallbladder seen on computed tomography and ultrasound. Am J Gastroenterol 81 : 202 204, 1986
- Fotiadis C, Gugulakis A, Nakopoulou L et al : Primary leiomyosarcoma of the gallbladder. HPB Surg 2 : 211 214, 1990
- Kumar S, Gupta A, Srivastava UK et al : Leiomyosarcoma of gallbladder. Indian J Pathol Microbiol 36 : 78 80, 1993
- Danikas D, Theodorou SJV, Singh R et al : Leiomyosarcoma of the gallbladder : a case report. Am Surg 67 : 873 874, 2001
- 谷合信彦, 江上 格, 岡崎滋樹ほか : 胆嚢炎で発症した胆嚢原発平滑筋肉腫の1切除例. 日消外会誌

- 31 : 870 874, 1998
- 9) 北村文近, 櫻木良友, 渋谷智頭ほか : 胆嚢炎で発症した胆嚢平滑筋肉腫の 1 例 . 日消外会誌 32 : 1919, 1999
- 10) Paciorek ML, Ross GJ : MR imaging of primary pancreatic leiomyosarcoma. Br J Radiol 71 : 561 563, 1998
- 11) Tanaka H, Westesson PL, Wilbur DC : Leiomyosarcoma of the maxillary sinus : CT and MRI findings. Br J Radiol 71 : 221 224, 1998
- 12) Ohnishi T, Yoshioka H, Ishida O : MR imaging of gastrointestinal leiomyosarcoma. Radiat Med 9 : 114 117, 1991
- 13) Vaittinen E : Sarcoma of the gallbladder. Ann Chir Gynaecol Fenn 61 : 185 189, 1972
- 14) 広川雅之, 本田一郎, 渡辺 敏ほか : 胃と他臓器重複癌の臨床病理学的検討 . 日消外会誌 32 : 1160 1165, 1999

A Case of Primary Leiomyosarcoma of the Gallbladder Synchronously
Overlapped with Early Gastric Cancer

Tatsuaki Ishii, Kazuhiko Watanabe, Hitoshi Kin, Masahiko Muro, Kenji Uda, Hitoshi Idani,
Akihisa Kaneko, Hiroshi Sasaki, Kiyoshi Takahashi* and Mitsuo Narusue
Department of Surgery, Fukuyama Municipal Hospital
*Faculty of Health Science, Okayama University Medical School

Primary leiomyosarcoma of the gallbladder is an extremely rare neoplasm. To the best of our knowledge, this is the first case in the Japanese and English literature of synchronously concomitant primary leiomyosarcoma of the gallbladder and adenocarcinoma of the stomach. A 80-year-old woman admitted for right upper quadrant pain was suspected of cancer of the gallbladder and early gastric cancer based on abdominal ultrasonography, CT, MRI, ERCP and gastrointestinal endoscopy. MRI appearance of the gallbladder tumor was intermediate intensity on T1 weighed images and slightly high intensity on T2 weighed images. We conducted extended cholecystectomy and distal gastrectomy. The resected specimen histologically proved to be leiomyosarcoma of the gallbladder and adenocarcinoma of the stomach. In 21-month follow-up, the patient was well with no recurrent evidence of either malignancies.

Key words : leiomyosarcoma, gallbladder, gastric cancer

[Jpn J Gastroenterol Surg 35 : 517 521, 2002]

Reprint requests : Tatsuaki Ishii Department of Surgery, Fukuyama Municipal Hospital
5 23 1 Zaou-cho, Fukuyama-city, Hiroshima, 721 8511 JAPAN
