

症例報告

肝転移を伴う胃粘膜下腫瘍との鑑別が困難であった胃重複症の1例

仙台社会保険病院外科, 同 病理*

高山 哲郎 佐藤 孝臣 天田 憲利 織井 崇
菊地 廣行 芳賀 泉 名倉 宏*

症例は44歳の女性で、他院での腹部超音波検査にて肝腫瘍を指摘され精査加療目的に紹介されたが、当院での上部消化器内視鏡検査にて胃前庭部後壁に粘膜下腫瘍を指摘された。その際の生検組織検査およびその他各種画像診断にて確定診断が得られず、またCEA 13.6ng/dlと高値であり胃粘膜下腫瘍とそれに伴う肝転移を否定できなかったため、幽門側胃切除術および肝部分切除術を施行した。胃切除標本では弾性軟腫瘍であり胃粘膜面は正常、断面にて嚢胞内に乳頭状に隆起し充満した腺管構造物を認めた。永久標本による病理組織検査では腫瘍性変化はなく胃重複症の診断であり、術前に転移と思われた肝腫瘍は腺腫様過形成であった。胃重複症は良性の先天性疾患であり幼少期に消化器症状を主訴に発見されることが多く、成人において無症状下に発見される例は極めてまれであるが、胃粘膜下腫瘍の鑑別診断の際には念頭に置いておくべき疾患である。

はじめに

消化管重複症は舌根から肛門に至る全消化管に発生する比較的まれな先天性疾患であり、そのなかでも胃重複症はさらにまれである。今回、我々は無症状下に発見された胃重複症に対し、胃粘膜下腫瘍・多発性肝転移との鑑別が困難であった症例を経験したので報告する。

症 例

患者：44歳，女性

主訴：症状なし。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：平成9年より全身性エリテマトーデスに伴う慢性腎不全にて近医にて血液透析中。ほかC型肝炎および高血圧。

現病歴：平成15年9月、血液透析通院中の他院での定期腹部超音波検査にて肝腫瘍を指摘され、全身の精査および加療目的に当院紹介入院となった。

入院時現症：身長159cm，体重43kg，体温

36.4℃，血圧155/83mmHg，脈拍63回/分，腹部は平坦かつ軟であり，圧痛や筋性防御なく，腫瘍は触知しなかった。

入院時検査成績：血液生化学検査ではヘモグロビン10.2g/dlと軽度貧血を認め、BUN 64mg/dl，クレアチニン9.9mg/dlと腎機能異常を認めたが、肝機能や脂質，電解質は正常であった。腫瘍マーカーではCEA 13.6ng/dlと高値であったが、CA19-9，AFP，PIVKA-2は正常であった。

胸腹部X線写真：特に異常所見なし。

上部消化管透視検査：立位充盈像にて胃前庭部後壁から突出する腫瘤を認め、粘膜下腫瘍が疑われた (Fig. 1)。

上部消化管内視鏡検査：胃前庭部後壁に、長径約5cmで表面は正常胃粘膜に覆われ頂部にdelle様の陥凹 (太矢印) を伴う粘膜下腫瘍あり (Fig. 2a)。引き続き施行した超音波内視鏡検査では粘膜層は正常であり、内部不均一な充実性腫瘍が疑われたが筋層との連続性は判然としなかった (Fig. 2b)。またdelle様陥凹部より鉗子を内部に挿入して得た生検組織検査では再生性変化を伴う慢性胃炎像であり、悪性を示唆する所見は認めな

<2004年9月22日受理>別刷請求先：高山 哲郎
〒981-8501 仙台市青葉区堤町3-16-1 仙台社会保険病院外科

Fig. 1 X-ray examination showed a large tumor shadow in the posterior wall of gastric antrum.



かった。

腹部超音波検査：胃粘膜下に内部構造不均一な腫瘍を認めた。また肝 S2 および S3 にそれぞれ径 1cm の低エコー腫瘍を認めた。

腹部 CT：胃内腔に突出し造影早期より濃染する腫瘍を認めたが、周囲への浸潤や脾実質との連続性は認めなかった (Fig. 3a)。また肝外側区域に 2 個の早期濃染する腫瘍を認めた (Fig. 3b)。

入院後経過：各種検査にて確定診断が得られず、また腫瘍長径が約 5cm と大きく CEA 13.6ng/dl と高値であったため、gastrointestinal stromal tumor (GIST) などの間葉系胃粘膜下腫瘍やその他悪性腫瘍とそれに伴う同時性肝転移を否定できず、患者と十分に協議のうえ 2004 年 2 月 17 日に幽門側胃切除術および肝部分切除術 (2 か所) を施行した。2 個の肝腫瘍は術中迅速組織検査ではいずれも悪性所見 (-) であった。

胃の摘出標本所見：胃前庭部後壁に、径 50×32×24mm の可動性良好で内腔に突出する弾性軟腫瘍を認めた。胃粘膜面は正常であり、頂部に delle 様の陥凹 (太矢印) を伴っていた。それ以外

にも切除標本中に小ポリープが散在していた (細矢印) (Fig. 4a, b)。剖面にて嚢胞内に乳頭状に隆起し充満したポリープ様の腺管構造物を認めた (Fig. 5)。

病理組織所見：胃粘膜下層に嚢胞が形成され、嚢胞壁はほぼ正常の胃粘膜で被覆されており、一部は腸上皮化生を伴い乳頭状に隆起したポリープ様となっていた。また嚢胞壁には胃筋層に連続した平滑筋層を認めており、先天性胃重複症と診断された (Fig. 6)。その他胃粘膜の隆起性病変も形態的には類似しており、多発性を示唆する所見であった。肝腫瘍はいずれも腺腫様過形成と診断された。

術後経過：SLE に伴う慢性腎不全にて週 3 回の血液透析および連日プレドニン 5mg 内服していたため、術後に一部創傷治癒遅延を認めたが、その他経過は良好であり第 25 病日に退院となった。術前高値であった血清 CEA は、術後 14 病日でも 16.1ng/dl と依然高値であり、慢性腎不全の影響も考えられるものの全身検索にてその他の悪性病変が発見されず、現在も嚴重に経過観察中である。

考 察

消化管重複症は Ladd および Gross により①内面が消化管粘膜で覆われ、②平滑筋を有し、③消化管に密着して存在する、と定義されている¹⁾。また胃重複症は Rowling により①胃に近接して存在し、②胃筋層に連続する平滑筋層を有し、③内面が消化管粘膜で覆われている、と定義されており²⁾、自経例はいずれの条件をも満たす典型例であった。しかし一般的には筋層が連続しない症例も含め、厳密にこれら 3 条件を満たさないものも胃重複症として広義に扱われているのが現状である。

消化管重複症は胎生期における前腸の分離異常による先天性疾患であるという説が有力であり、その約 70% は幼小児期に有症状下に発症すると言われている³⁾。また消化管重複症の主発生部位は小腸および結腸であり、胃重複症の頻度は低く全体の 2.9~10.4% と報告されており^{4)~6)}、われわれが医学中央雑誌および MEDLINE にて検索しえ

Fig. 2 (a) Endoscopic view showed a submucosal tumor with a smooth surface and a delle like depression (bold arrow). (b) Endoscopic ultrasonography showed a normal mucosal layer and a solid tumor with irregular internal echoes, unclearly linked to the muscular layer.

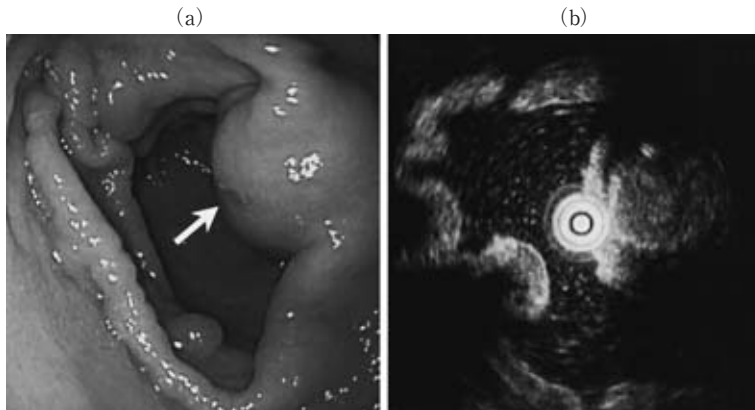
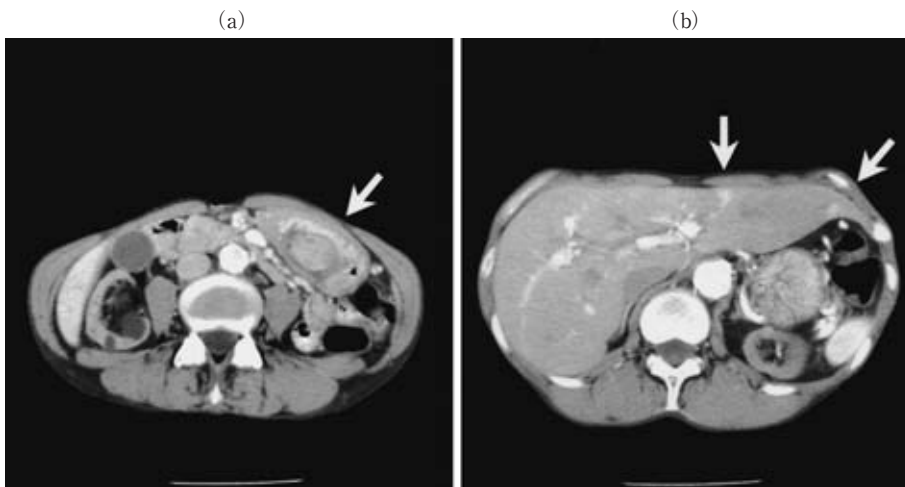


Fig. 3 Abdominal computed tomography showed (a) an early enhanced submucosal tumor in the posterior wall of gastric antrum and (b) two early enhanced tumors in the lateral segment of liver. The gastric tumor was not invasive and not communicated with pancreas.



た限りでは、本症例も含めて本邦での胃重複症は106例であった。

胃重複症の臨床症状としては上腹部痛や腹部膨満感、腹部不快感、嘔吐、腫瘤触知などさまざま⁷⁾、さらに腫瘤からの出血や感染、慢性膵炎や癌の合併なども報告されており、こうした多彩な臨床経過が術前の確定診断を困難にさせる要因となっている⁸⁾。成人になるまで無症状で経過した症

例も報告されているが⁹⁾、山田ら¹⁰⁾がまとめた本邦の成人胃重複症36例のうち発見まで無症状で経過したものはわずかに4例のみと極めてまれであり、術前に本症を鑑別診断に挙げることは困難であったと言わざるをえない。

また、胃重複症を各種画像検査で診断することも困難とされており、最終的には切除標本の病理組織検査による確定診断が必要である¹¹⁾。典型的

Fig. 4 (a, b) Resected specimen showed an elastic soft and well-movable tumor covered with normal mucosa and a delle like depression (bold arrow), and some small polyps (narrow arrow).

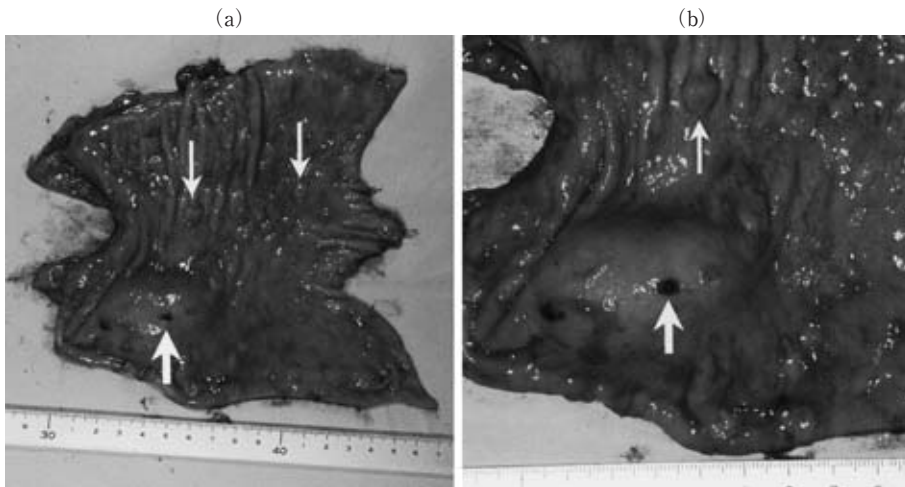
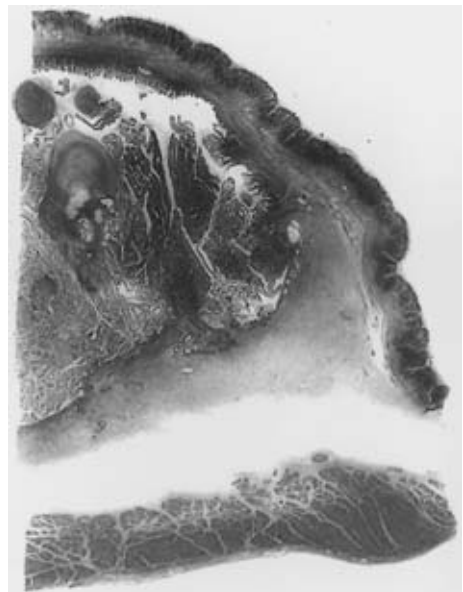


Fig. 5 Cut surface presented a cystic capsule filled with papillary polyp like epithelium.



Fig. 6 Microscopic view in H.E. staining showed a cystic lesion in the submucosal layer. Cystic wall consisted of a normal gastric mucosa and a smooth muscular layer linked to the original gastric muscular layer, and bulged with papillary epithelium.



な胃重複症は超音波検査やCT・MRIなどで嚢胞性腫瘍としてとらえられることが多いが、本症例のように内部不均一な充実性腫瘍と判断される場合もあり、画像診断のみでは確定診断には至らない。超音波内視鏡検査においても胃重複症に特異的な所見はなく、これまでの報告でも単純性嚢胞¹²⁾や肝嚢胞腺腫¹³⁾、脾嚢胞¹⁴⁾、迷入腺¹⁵⁾など、術前診断はさまざまである。神谷らがまとめた本邦の成人胃重複症 56 例でも、消化管重複症の術前診断を得たのは 6 例のみであった⁷⁾。今回は施行しなかったが、^{99m}Tc シンチグラム検査が異所性胃粘膜の検出に有効であったという報告もある¹⁶⁾。胃重複症でありながらシンチグラムにて集積しない症例の報告もあり⁸⁾、確定診断は慎重に決定しなければならないが、本症例に対しては施行すべき検査であった。

本症例は自覚症状の訴えはなかったが、術前 CEA が高値であったこと、腫瘍径が 5cm と大き

かったこと、肝外側区域に転移性腫瘍を疑わせる腫瘍を認めていたことより、悪性の胃粘膜下腫瘍を完全には否定できず、患者と十分に協議のうえ切除術を施行した。肝切除術を併施予定であったため通常の開腹手術にて施行したが、近年、腹腔鏡下に胃重複症を外科治療した報告も散見されており¹⁷⁾¹⁸⁾、仮に術前診断がGISTであっても腫瘍径5cmまでは鏡視下による胃局所切除術の適応とされていることから¹⁹⁾、胃病変のみであれば鏡視下手術のよい適応となる疾患である。結果として本症例では胃および肝臓病変のいずれも良性疾患であったことから、今回の反省点として、胃部分切除術および肝生検術にて確定診断を得てから2期的に手術を計画すべきであったと思われる。

胃重複症はまれな先天性かつ良性疾患である。しかし、術前診断のつかない胃粘膜下腫瘍の場合、鑑別診断の1つとして挙げるべき疾患であると考えられた。

文 献

- Ladd WE, Gross RE : Surgical treatment of duplication of the alimentary tract. *Surg Gynecol Obstet* **70** : 295—307, 1940
- Rowling JT : Some observation on gastric cysts. *Br J Surg* **46** : 441—445, 1959
- Bartels RJ : Duplication of the stomach. Case report and review of the literature. *Am Surg* **33** : 747—752, 1967
- Gross RE, Holcomb GW, Farber S : Duplication of the alimentary tract. *Pediatrics* **9** : 449—468, 1952
- 長嶺信夫, 宮城 靖, 遠藤 巖ほか : 消化管重複症—症例報告ならびに本邦文献報告180例の統計学的観察—。 *外科診療* **19** : 466—471, 1977
- 軍司祥雄, 竜 崇正, 石川達雄ほか : 胆道系と交通を有する特異な重複胃の1治験例。 *臨外* **36** : 139—145, 1981
- 神谷保廣, 長谷川毅, 野村則和ほか : 重層線毛円柱上皮と未熟胃粘膜上皮とよりなる胃の重複症の1例。 *日臨外医学会誌* **56** : 76—80, 1995
- 横山浩一, 浅田康行, 斎藤英夫ほか : 慢性膵炎を合併した胃重複症の1例。 *日消外会誌* **34** : 475—479, 2001
- 加納宣康, 山田直樹, 宮本康二ほか : 胃重複症—症例報告と文献的考察—。 *外科治療* **65** : 234—238, 1991
- 山田哲司, 山村浩然, 八木真吾ほか : 胃重複症の1例—症例報告と文献的考察—。 *外科治療* **81** : 248—251, 1999
- Kangarloo H, Sample WF, Hansen G et al : Ultrasonic evaluation of abdominal gastrointestinal tract duplication in children. *Radiology* **131** : 191—194, 1979
- 太田 学, 今野弘之, 馬場 恵ほか : 単純性嚢胞との鑑別が困難であった胃重複症の1例。 *Gastroenterol Endosc* **41** : 1101—1106, 1999
- 小島正幸, 吉見富洋, 朝戸裕二ほか : 術前肝嚢胞腺腫と診断した胃重複症の1例。 *日消病会誌* **95** : 1126—1130, 1998
- Glaser C, Kuzinkovas V, Maurer C et al : A large duplication cyst of the stomach in an adult presenting as pancreatic pseudocyst. *Dig Surg* **15** : 703—706, 1998
- 堀井孝容, 金政一之, 竹内孝幸ほか : 異所性隣組織を伴った胃重複症の1例。 *Gastroenterol Endosc* **43** : 833—838, 1999
- 田中千弘, 横尾直樹, 北角泰人ほか : 前腸からの発生が示唆された食道・胃にまたがる噴門部消化管重複症の1例。 *日消外会誌* **34** : 1400—1404, 2001
- Machado MA, Santos VR, Martino RB et al : Laparoscopic resection of gastric duplication : successful treatment of a rare entity. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* **13** : 268—270, 2003
- Sasaki T, Shimura H, Ryu S et al : Laparoscopic treatment of a gastric duplication cyst : report of a case. *Int Surg* **88** : 68—71, 2003
- 大平寛則, 大山繁和, 山口俊晴ほか : GIST (gastrointestinal stromal tumor) の標準的手術療法。 *臨外* **59** : 153—156, 2004

Gastric Duplication Cyst Presenting as Gastric Submucosal Tumor with Liver Metastases

Tetsuro Takayama, Takaomi Sato, Noritoshi Amada, Takashi Orii,
Hiroyuki Kikuchi, Izumi Haga and Hiroshi Nakura*
Departments of Surgery and Pathology*, Sendai Syakaihoken Hospital

A 44 year-old woman with multiple liver tumors was diagnosed with a submucosal tumor in the posterior wall of the gastric antrum by gastrointestinal endoscopy. Because we could not exclude malignant submucosal tumor and multiple liver metastases in endoscopic biopsy, X-ray examination, ultrasonography, computed tomography, or serum CEA (13.6ng/dl), we conducted distal gastrectomy and partially resected liver tumors. Macroscopically, the gastric tumor was elastic, soft, and covered with normal mucosa. The cut surface presented a cystic capsule filled with papillary epithelium. The definitive pathological diagnosis was gastric duplication cyst for the gastric submucosal tumor and adenomatous hyperplasia for the liver tumors. Gastric duplication cyst is a benign congenital anomaly mainly found in childhood with enteric disorders. Although asymptomatic adult duplications are rare, they should be considered in the differential diagnosis of gastric submucosal tumors.

Key words : gastric duplication cyst, gastric submucosal tumor

[Jpn J Gastroenterol Surg 38 : 151—156, 2005]

Reprint requests : Tetsuro Takayama Department of Surgery, Sendai Syakaihoken Hospital
3-16-1 Tsutsumi-cho, Aoba-ku, Sendai, 981-8501 JAPAN

Accepted : September 22, 2004