

症例報告

腹部血管造影および色素注入法により出血部位を同定しえた 管内発育型小腸 GIST の 1 手術例

下館市民病院外科, 日本医科大学大学院医学研究科臓器病態制御外科学*

柳 健 古谷 政一 清水 康仁
山本 一仁 坂東 功一 田尻 孝*

症例は 57 歳の男性で, 下血を主訴として来院した。上部・下部消化管内視鏡検査にて出血性病変を認めず, 小腸出血を疑い腹部血管造影および CT during arteriography を施行したところ, 第 1 空腸動脈末梢の腸管内に腫瘍濃染像を認めた。小腸腫瘍の診断にて, 血管造影時のマイクロカテーテルを腫瘍栄養血管に留置した状態で開腹手術施行した。同カテーテルからの色素注入にて腫瘍の局在部位を漿膜面から肉眼的に同定し, 切除しえた。病理組織学的検索にて, 低悪性度の GIST と診断した。下血で発症し管内性の発育形式をとる小腸 GIST の報告は本邦では自験例のみであり, また血管造影および腫瘍血管に留置したマイクロカテーテルからの色素注入法にて, 出血部位を画像的・肉眼的に同定する方法は, 緊急時でも速やかに的確な診断・治療を行えると考えられた。

はじめに

近年, 消化管間葉系腫瘍は gastrointestinal stromal tumor (GIST) という概念で総称されている。その中でも小腸 GIST は胃 GIST に次ぐ頻度とされ, 出血を伴った場合, 治療の緊急性があるにもかかわらず, 診断や治療に難渋することも少なくない。

今回われわれは腹部血管造影検査にて出血部位を同定し, かつ同検査時に留置したカテーテルからの色素注入により, 開腹時に腫瘍の局在部位を肉眼的に確認しえた管内発育型小腸 GIST の 1 手術例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 57 歳, 男性

主訴: 下血

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: てんかん発作。2003 年 5 月貧血精査にて入院するも, 原因不明であった。

現病歴: 2004 年 4 月初旬夕食後, 下痢とともに

赤褐色便を認めたため, 翌日当院受診した。来院時多量の下血を認め, 精査加療目的にて同日緊急入院となった。

入院時現症: 身長 165cm, 体重 64kg, 体温 36.7°C, 血圧 96/62mmHg, 脈拍 104/min。意識清明。眼瞼結膜に軽度の貧血を認めた。腹部所見には異常を認めなかった。

入院時検査成績: Hb 12.0g/dl と軽度低下, GPT, ALP, γ -GTP の軽度上昇を認めた (Table 1)。CEA, CA19-9 は正常値であった。

下部消化管内視鏡検査所見: 直腸から全結腸内に大量の凝血塊および血液の貯留, 附着を認めたが, 出血源となる病変は認めなかった。また, 終末回腸から血液の流出を認めた。

上部消化管内視鏡検査所見: 十二指腸水平脚まで観察するも出血性病変および凝血塊を認めず, 萎縮性胃炎の所見のみであった。

腹部 CT 所見: 左中腹部に 50mm 大の拡張腸管を認めたが, 質的診断は困難であった (Fig. 1)。

以上より小腸出血と診断したが, 検査中も下血が続き, 血圧 68/42mmHg, Hb 6.6g/dl まで低下し, ショック状態に陥ったため濃厚赤血球 4 単位

Table 1 Laboratory data on admission

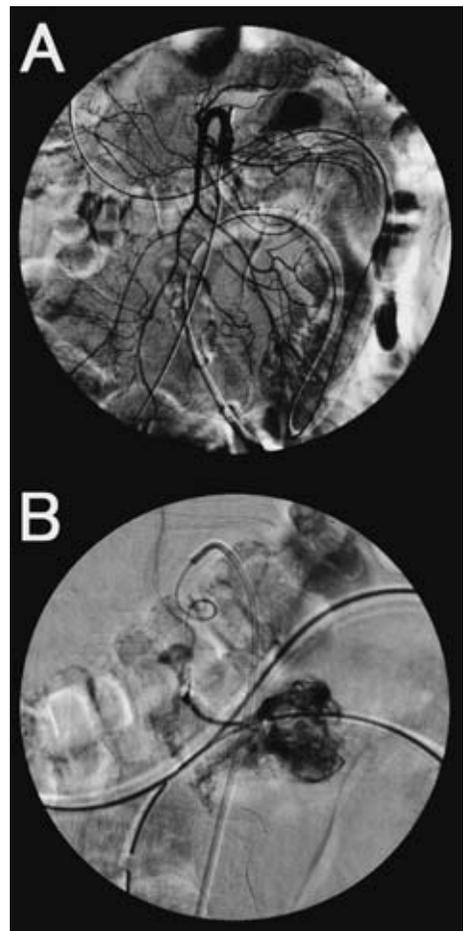
WBC	9,100 / μ l
RBC	378×10^4 / μ l
Hb	12.0 g/dl
Plt	16.6×10^4 / μ l
TP	6.4 g/dl
Alb	3.6 g/dl
GOT	18 IU/L
GPT	48 IU/L
ALP	274 IU/L
LDH	283 IU/L
γ -GTP	192 IU/L
T-Bil	0.39 mg/dl
BUN	12.2 mg/dl
Crea	0.7 mg/dl
CRP	0.2 mg/dl
CEA	1.3 ng/ml
CA 19-9	8.1 U/ml

Fig. 1 Abdominal plain CT showed only dilatation of small intestine or colon.

輸血した。輸液、輸血によりショック状態を改善したのち、出血部位の同定のため小腸造影および腹部血管造影を施行した。

小腸造影検査所見：イレウス管を挿入し小腸造影を施行した。空腸の拡張を認めたが、腫瘍陰影等の異常所見は認めなかった。イレウス管からは多量の血液の流出を認めた。

腹部血管造影検査所見：右大腿動脈より5FrのカテーテルをSeldinger法にて挿入した。上腸間膜動脈造影動脈相にて、第1空腸動脈末梢に径2.0cm大の腫瘍濃染像を認めた(Fig. 2A)。マイク

Fig. 2 A : SMA angiography revealed the hypervascular mass. B : Selective angiography of 1st. jejunum artery showed the tumor stain.

ロカテーテルを腫瘍栄養血管に選択的に留置し(Fig. 2B)、造影剤注入と同時にCTの撮影(CT during arteriography; 以下, CTA と略記)を施行したところ、左腹腔に辺縁比較的整で一部陥凹を伴う腫瘍濃染像を腸管内に認めた(Fig. 3A)。さらに、3D画像を作製したところ、同血管を栄養血管とする境界比較的明瞭な腫瘍像を認めた(Fig. 3B)。

以上の所見より hypervascular な空腸原発腫瘍からの消化管出血の診断にて、来院7時間後に緊急開腹術を施行した。開腹時に腫瘍の局在部位を同定するために、血管造影時のマイクロカテーテ

Fig. 3 A : CT during selective arteriography showed the tumor stain about 20mm in size inside the small intestine wall (arrow). B : 3D-CT showed the tumor shape and location in the abdominal cavity (arrow).

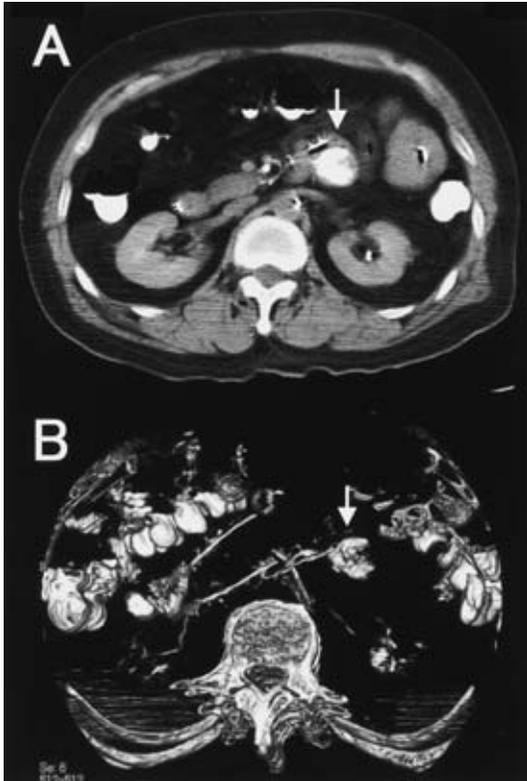


Fig. 4 Operative findings showed a stained tumor vessel when indigocarnime was injected in the micro catheter of angiography (arrow).

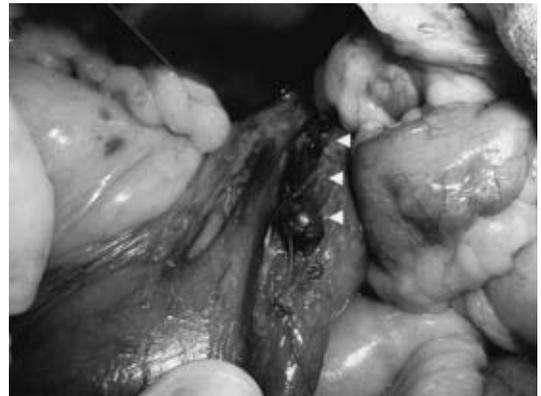
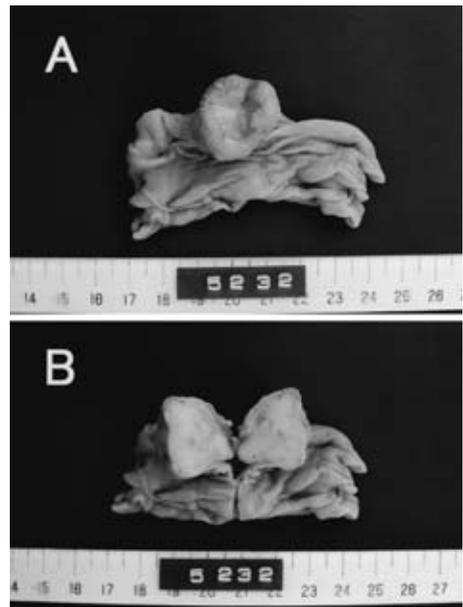


Fig. 5 A : Macroscopic resected specimen showed a projecting tumor in jejunum that had an ulcer at the top. B : Sliced section of the tumor revealed a white solid tissue.



ルを留置した状態で手術室に搬送した。

手術所見：開腹時、腹水、腹膜播種などの所見は認めず、小腸内に暗青色の血液貯留が透見された。Treitz 靱帯より 20mm の空腸にかろうじて腫瘤らしき硬結を触知したが、漿膜面には腫瘤の壁外浸潤を認めなかった。腫瘍栄養血管に留置したマイクロカテーテルよりインジゴカルミン 3ml を注入したところ、同部位の動脈が染色され、画像診断と同一部位であることを漿膜面から肉眼的に確認しえた (Fig. 4)。

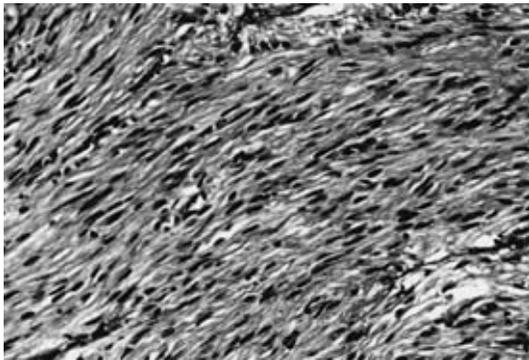
以上より染色部位を含めた空腸を約 60mm 部分切除した。

摘出標本肉眼所見：管内に突出し正常粘膜に覆われた 18×16mm の粘膜下腫瘍を認めた。頂部に

潰瘍を形成していたが、露出血管を認めなかった (Fig. 5A)。断面は白色、充実性の腫瘍であり、漿膜面に異常を認めなかった (Fig. 5B)。

組織学的所見：切除された小腸には筋層から漿

Fig. 6 Microscopic findings showed a fascicular proliferation of spindle-shaped cells with highly cellularity (H.E.×200).



膜下にかけて紡錘形細胞の増殖からなる腫瘍を認めた。紡錘形細胞は両端の尖った(cigar cut 状)核を持ち、束状、渦巻き状など多彩な走向を示した。胞体はやや好酸性で筋性優位であったが、一方で神経性様の淡明な領域も存在した。核分裂像は極少数で目立たないが、細胞密度は高度であった (Fig. 6)。

免疫組織化学的所見：紡錘形の腫瘍細胞はc-kit (Fig. 7A) および CD34 (Fig. 7B) がびまん性に陽性を示した。Vimentin, Desmin, s-100 protein, α SMA は何れも陰性であった。

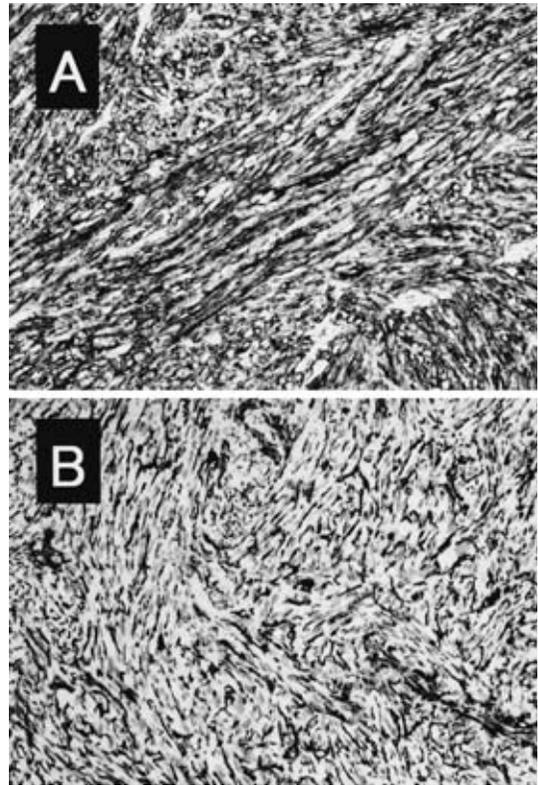
Ki-67 の発現率は5~6 個/HPF で、腫瘍の大きさと合わせて考慮し、低悪性度の狭義の GIST と診断した。

術後経過は良好で退院した。

考 察

近年、免疫組織学および電子顕微鏡的手法の進歩により、消化管の間葉系腫瘍は GIST と総称されるようになった。Rosai の分類¹⁾による狭義の GIST のうち臓器的には胃が 54~77% とともに頻度が高く、ついで小腸が 15~23% で、大腸が 6~16% の頻度となっている^{2)~4)}。小腸 GIST の初発症状は腹痛、腹部腫瘤触知、消化管出血、腸閉塞症状などとされているが、いずれも本疾患に特有なものではなく、他の消化管に発生する GIST に比較して、術前の診断に難渋することが多いとされている⁴⁾。とくに腫瘤の小さいものでは、CT,

Fig. 7 Immunohistochemical findings showed that the spindle cells were diffusely immunoreactive for c-kit (A) and CD34 (B) (×200).



超音波検査などの通常の画像診断では描出されることが少なく、また出血を伴った場合には迅速な診断、治療が求められるにもかかわらず、腫瘍の局在部位を確定することが困難となることが多い⁵⁾。

本症例では多量の下血で発症し、上部・下部消化管内視鏡検査にて出血性病変を認めなかったため、小腸出血を疑い小腸造影、腹部血管造影を施行した。空腸動脈末梢に腫瘍濃染像を認めたため、小腸腫瘍と診断したが、腸管壁との関係を検出するためにさらに CTA を施行した。CT にて診断可能な小腸 GIST は通常、管腔外を膨張性に増殖する辺縁平滑な腫瘍として描出しえるとされているが⁶⁾、本症例の CTA では管腔内におさまる腫瘍濃染像として描出された。通常の造影 CT は腫瘍性病変の診断については腫瘍径が 20mm 以上ない

と難しいと報告されているが⁷⁾, 腫瘍栄養血管より造影剤を注入する CTA は, 20mm 以下の小腸 GIST においてもより優れた検出能力をもつと考えられた。

CTA により, 小腸管腔外に突出している所見がなく, 開腹時に病変の局在部位の確認が困難になることが予測されたため, 血管造影時のマイクロカテーテルを留置した状態で手術に臨んだ。色素注入直後に腫瘍血管が青緑色に染色され, 腫瘍の局在部位を同定しえた。腫瘍栄養血管に留置したカテーテルからの開腹時の色素注入法は, 漿膜面から認識し難い小さな管内発育型の小腸腫瘍に対して, 非常に有用であると考えられた。血管造影時に著明な血管外漏出像を認めた場合, 一時的な止血目的で動脈塞栓術 (TAE) を施行する報告が散見される⁸⁾。しかし, 本症例の場合 Treitz 靱帯から腫瘍までの距離が短く, TAE にて吻合部の腸管が壊死に陥る可能性があることと, TAE 後では色素注入にて漿膜側から腫瘍の局在部位の確認が不可能となることにより, TAE は施行しなかった。

JMEDPlus および PubMed から検索しえた限りでは本邦における小腸 GIST の報告は 90 例であり, 消化管出血を伴うものは 24 例であった。そのうち下血で発症し, 漿膜浸潤を認めない管内発育型小腸 GIST の報告は自験例のみであり, 術前に管内発育型と予測しえたまれな症例である。本症例の如く, 血管造影および腫瘍血管留置マイクロカテーテルからの色素注入法にて, 出血部位を画像的・肉眼的に同定する方法により, 緊急時でも速やかに的確な診断・治療を行えると考えられた。

小腸 GIST に対する治療法としては, 放射線療法, 化学療法はほとんど無効であり, 外科的切除が唯一の根治的治療法である⁶⁾。一般的にはリンパ

節転移はきわめてまれであり, 手術時のリンパ節郭清は必要ないとされている⁹⁾¹⁰⁾。しかし, 小腸 GIST は他の臓器に発生する GIST に比較して, その悪性度が高いとされており⁴⁾¹¹⁾, 術後再発として肝転移や腹膜播種が多いという報告があるため⁹⁾¹⁰⁾, 手術後も厳重な経過観察が必要であると考えられる。

文 献

- 1) Rosai J: Stromal tumors. Ackerman's Surgical Pathology. 8th Ed. Mosby-Year Book, St. Louis, 1996, p616—666
- 2) DeMatteo RP, Lewiss JJ, Leung D et al: Two hundred gastrointestinal stromal tumors: recurrence patterns and prognostic factors for survival. *Ann Surg* **231**: 51—58, 2000
- 3) Pierie JP, Choudry U, Muzikansky A et al: The effect of surgery and grade on outcome of gastrointestinal stromal tumors. *Arch Surg* **136**: 383—389, 2001
- 4) 藤田淳也, 島野高志, 福島幸男ほか: 小腸 GIST の診断と治療. *外科* **63**: 1062—1069, 2001
- 5) 熊田恵介, 鈴木幸一郎, 仁科雅良: 下部消化管出血 小腸出血. *救急医* **25**: 1671—1675, 2001
- 6) 江上 寛, 山本謙一郎, 小川道雄: 小腸・大腸 GIST の外科治療. *コンセンサス癌治療 2*. へるす出版, 東京, 2003, p88—91
- 7) 光吉一弘, 浅尾寧延, 高村宙二ほか: 大量下血を呈した小腸 Stromal Tumor の 1 例. *外科* **63**: 867—870, 2001
- 8) 中山 中, 辻本和雄, 伊藤憲雄ほか: 大量の下血で発症し, 腹部血管造影にて診断された空腸原発 gastrointestinal stromal tumor の 2 例. *外科* **65**: 851—855, 2003
- 9) 栗田 啓, 高嶋成光, 久保義郎ほか: 胃平滑筋肉腫 19 例の臨床病理学的検討. *日消外会誌* **30**: 2134—2139, 1997
- 10) 高見元敏, 藤田淳也, 塚原康生ほか: GIST の臨床的取り扱い. *胃と腸* **36**: 1147—1156, 2001
- 11) Emory TS, Sobin LH, Lukes L et al: Prognosis of gastrointestinal smooth-muscle (stromal) tumors: dependence on anatomic site. *Am J Surg Pathol* **23**: 82—87, 1999

A Case of Surgery for Gastrointestinal Stromal Tumor of Small Intestine with Intraluminal Growth for which the Anatomic Bleed Site was Determined by Intraoperative Infusion of Dyes Through a Catheter Deployed During Abdominal Angiography

Ken Yanagi, Masaichi Furuya, Yasuhito Shimizu, Kazuhito Yamamoto,
Koichi Bando and Takashi Tajiri*
Department of Surgery, Shimodate Municipal Hospital
Department of Surgery for Organ Function and Biological Regulation,
Nippon Medical School, Graduate School of Medicine*

Upper and lower gastrointestinal tract endoscopy failed to find the bleeding site in a 57-year-old man with hematochezia. Abdominal angiography and CT during arteriography to assess suspected small intestinal bleeding showed intra intestinal tumor staining from the periphery of the first jejunal artery. This was diagnosed preoperatively as an intestinal tumor and laparotomy was conducted placing a micro catheter in the artery that supplied the tumor for angiography. The serous membrane at the tumor growth was identified by infusion of dyes through the catheter. Histopathological examination showed low-grade malignant gastrointestinal stromal tumor (GIST). This is, to our knowledge, the first and only case in Japan of GIST manifested with melena and intra intestinal development. This case also indicates that intraoperative infusion of dyes through a catheter during angiography is helpful in determining the anatomic region of the tumor and contributes to prompt diagnosis and treatment, even in an emergency.

Key words : gastrointestinal stromal tumor, small intestine, angiography

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 38 : 330—335, 2005]

Reprint requests : Ken Yanagi Department of Surgery, Shimodate Municipal Hospital
1658 Tamado, Shimodate, 308-0847 JAPAN

Accepted : October 19, 2004