

症例報告

## Positron emission tomography/CT が病期診断に有用であった 食道原発悪性黒色腫の1切除例

安城更生病院外科

岡田 禎人 安部 哲也 新井 利幸 佐伯 悟三  
広松 孝 會津 恵司 中川 陽史 檜垣 栄治  
山内 康平 横井 俊平

症例は75歳の男性で、検診で行った上部消化管内視鏡検査で中部食道にメラニン沈着を伴う1型腫瘍を指摘され、生検で食道悪性黒色腫と診断された。Positron emission tomography/CTでは、縦隔内の小リンパ節は複数指摘可能であったが、それらへのtracerの集積は認めず、原発巣以外の病変は指摘できなかった。以上の検査所見より、リンパ節転移のない食道原発悪性黒色腫と診断した。切除手術の意義はあると判断し、右開胸開腹、食道亜全摘、3領域郭清、胸骨後再建術を施行した。切除標本の病理組織学的検査所見は、T1b (SM), N0であり、術前の診断どおりリンパ節転移は認めなかった。術後補助化学療法は行わなかった。術後1年の現在、再発は認めていない。食道原発悪性黒色腫はまれな疾患であり、確立した治療法はなく予後不良といわれているが、早期例では予後が期待できるとの報告もあり、術前の病期診断は非常に重要である。

### はじめに

食道原発悪性黒色腫はまれな疾患で原発性食道悪性腫瘍の0.1~0.2%を占めるにすぎない。確立した治療法はなく予後不良といわれていたが、近年の報告では比較的早期であれば切除手術にて長期生存も期待できるといわれている。F-18 標識フルオロデオキシグルコース (<sup>18</sup>F-fluorodeoxyglucose; 以下, FDG) を用いた positron emission tomography (以下, PET) は各種悪性疾患の診断にその有用性が期待されている検査である。我々は術前の病期診断にPET/CTが有用であった食道原発悪性黒色腫の1例を経験したので報告する。

### 症 例

患者: 75歳, 男性

主訴: 特になし

現病歴: 検診で毎年、上部消化管内視鏡検査を行っており、2006年4月、食道悪性黒色腫を指摘

された。

既往歴: 5年前白内障手術。

家族歴: 特記すべきことなし。

入院時現症: 身長151cm, 体重50kg。当院皮膚科を受診し皮膚に悪性黒色腫の所見や皮膚腫瘍切除の既往のないことを確認した。

入院時検査所見: 異常所見は認めなかった。

上部消化管造影検査所見: 中部食道に1型腫瘍を認めた (Fig. 1)。

上部消化管内視鏡検査所見: 中部食道に1/4周性の1型腫瘍を認めた。腫瘍にはメラニン沈着を認めた (Fig. 2)。生検で腫瘍細胞はS100陽性、HMB45陽性であり悪性黒色腫と診断した。

胸部腹部CT: 肝転移、肺転移は認めなかった。縦隔内に小リンパ節を数個認めた (Fig. 3)。周囲組織への浸潤はないと思われた。

PET/CT所見: 中部食道の原発巣にはFDGの強い集積を認めた。縦隔内の小リンパ節は複数指摘可能であったが、それらへのFDGの集積は認められなかった (Fig. 4)。

Fig. 1 Esophagogram showing a filling defect in the middle thoracic esophagus (arrow heads).

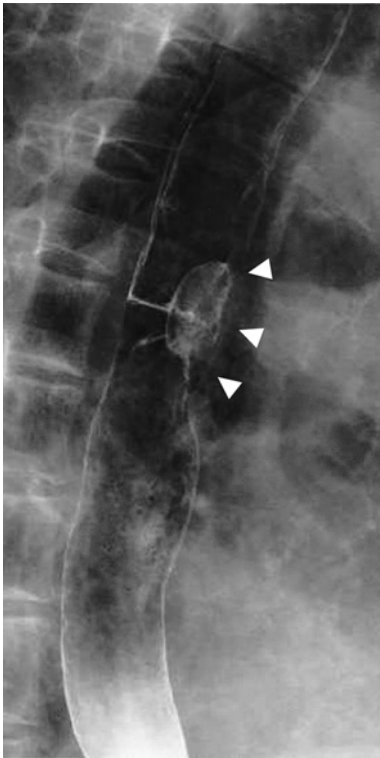
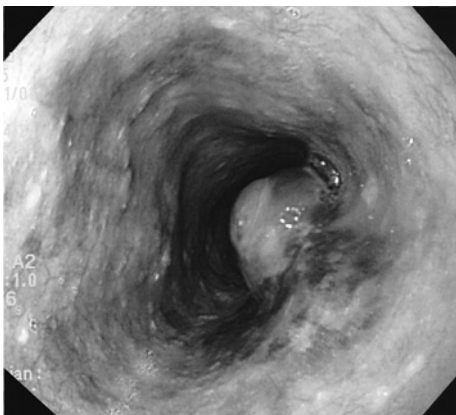
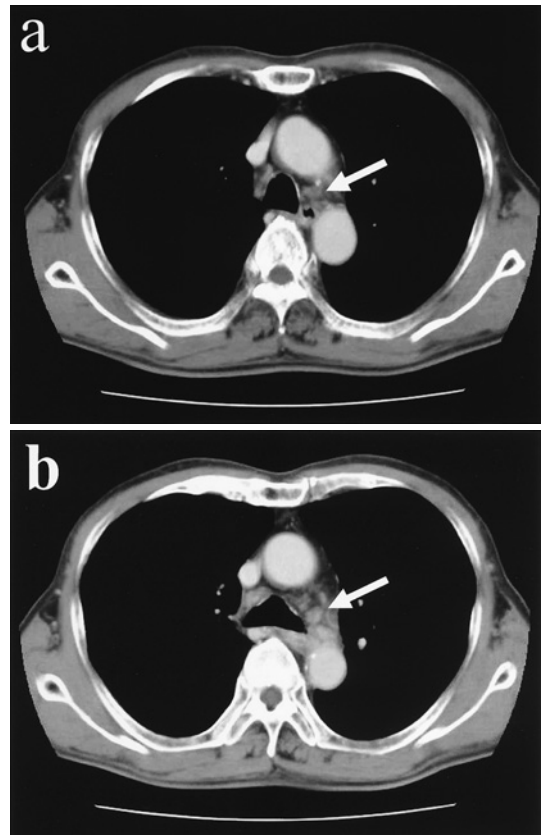


Fig. 2 Endoscopic examination revealed a pigmented elevated lesion in the middle thoracic esophagus.



以上の所見より、食道原発悪性黒色腫と診断した。最終的な臨床病期診断は T3N0M0, Stage II と診断した。切除例でも予後が非常に悪いとする

Fig. 3 Thoracic computed tomography showed small lymph nodes in the mediastinum (arrow).



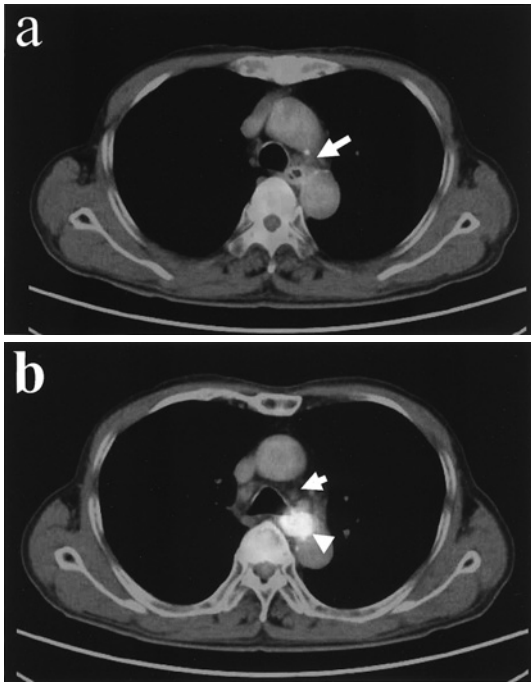
報告はあるが、PET/CT でリンパ節転移の所見を認めないことから切除手術の意義はあると判断し手術を施行した。

手術所見：右開胸開腹，食道亜全摘，3領域郭清，胸骨後経路にて胃管再建術を施行した。

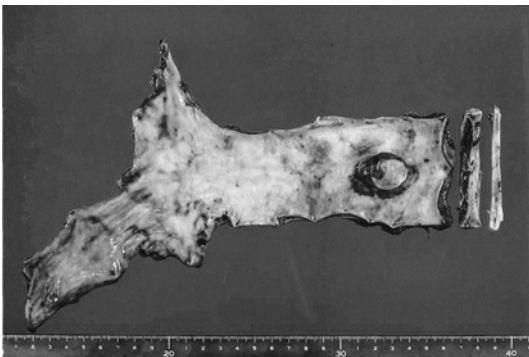
切除標本肉眼検査所見：中部食道に黒色調変化を伴う 1 型病変を認めた。腫瘍の大きさは 20×20 mm であった (Fig. 5)。

病理組織学的検査所見：異型が強く大小不同の見られる核を有する類円形～紡錘形細胞が、主に上皮基底側から粘膜下層で充実性に増殖し腫瘤状の病変を形成していた。部分的に胞体内にメラニン顆粒が認められた (Fig. 6a)。周囲には表皮基底層，粘膜固有層に腫瘍細胞が進展する junctional activity が見られた (Fig. 6b)。以上の所見より、食道原発悪性黒色腫と診断した。リンパ節転移は

**Fig. 4** PET/CT showed no accumulation of tracer in mediastinal lymph nodes (arrow heads). Accumulation of tracer was found in the primary lesion (arrow).



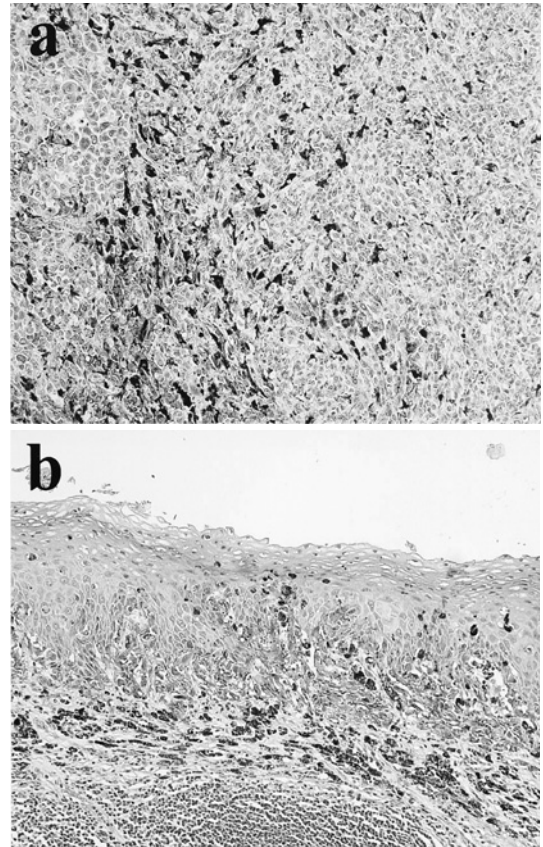
**Fig. 5** Photograph of the resected specimen revealed a 2.0×2.0 cm pigmented elevated lesion.



認めなかった。食道癌取扱い規約第9版では pT1b (pSM), ie (-), ly1, v0, pIM0, pN0, pPM, pStage Iであった。

術後経過：縫合不全，吻合部狭窄などの合併症は認めなかったが経口摂取が進まず，術後57日目

**Fig. 6** Microscopic finding of the main tumor a : Some tumor cells invade the submucosa. The tumor cells are oval to short spindle type in shape with prominent nucleoli. Melanin production is seen in some tumor cells. (HE ×200) b: Junctional activity was shown in the basal layer. (HE ×40)



にリハビリのため他病院に転院し，転院後35日目に退院した。術後1年目の現在再発を認めていない。

### 考 察

食道原発悪性黒色腫は原発性食道悪性腫瘍の0.1~0.2%とまれな疾患である<sup>1)</sup>。男女比は2:1，平均年齢は60歳，発生部位はLtに多いと報告されている<sup>2)</sup>。症状は嚥下困難，つかえ感などであるが，食道扁平上皮癌に比べ症状が出にくいといわれている<sup>3)</sup>。

本邦では山口ら<sup>4)</sup>が2003年までの193例を集計して報告している。その後の報告について医学中

央雑誌で2004年から2007年までの期間で「食道腫瘍」と「悪性黒色腫」をキーワードに食道原発悪性黒色腫を検索したところ、原著論文報告は16例であった。以上に自験例を加えた合計210例のうち、FDG-PETまたはPET/CTを術前診断に用いた症例は自験例を含めて4例<sup>5)~7)</sup>のみであった。

食道原発悪性黒色腫の診断基準についてはAllenら<sup>8)</sup>が次のように提唱している。1. 黒色腫の特徴的構造を有する。2. 腫瘍はポリープ様である。3. 隣接する上皮がメラニン細胞を有する。4. 粘膜基底層においてjunctional activityを有する。Junctional activityとは腫瘍辺縁において腫瘍細胞が基底層を越えて粘膜上皮内に伸展している像である。自験例は上記のすべてを満たしており、組織学的にも食道原発悪性黒色腫として矛盾がないものと思われた。

治療については、根治的な治療が他にないために手術が第1選択である。原発巣、再発巣に対して化学療法、内分泌療法、放射線療法が奏効したという報告は散見されるが<sup>9)~11)</sup>、その有用性を比較検討し証明した報告はない。また、術後補助化学療法についても同様に有効性を証明した報告はない。

食道原発悪性黒色腫の予後については、報告例を集計、検討した結果が諸家により報告されている。2000年以前の報告では、Sabanathanら<sup>12)</sup>は139例の検討から、平均生存期間9.8か月、5年生存率1.69%と報告しており、田中ら<sup>13)</sup>は76例の検討から、平均生存期間9.2か月であると報告している。また、岩瀬ら<sup>14)</sup>は125例の検討から、平均生存期間を手術例で11.1か月、非手術例で8.7か月と報告しており、いずれも予後不良である。しかし、近年ではVolpinら<sup>15)</sup>は238例の検討で5年生存率37%と報告し、山口ら<sup>4)</sup>は193例の検討で5年生存率30.7%と報告しており、予後は向上している。山口らは検討例の50%がStage 0, I, IIであり、早期発見が予後の向上につながったと述べている。

予後の良い条件が諸家により検討されており、田中ら<sup>13)</sup>は「5cm以下で12か月生存に有意差あり。リンパ節転移の有無、手術の有無は予後に関

係ない」としており、岩瀬ら<sup>14)</sup>は「T2以下、N2以下、M0で生存期間に有意差あり」と報告している。野見ら<sup>16)</sup>は、「2年以上生存例はT1b以下5cm以下である。リンパ節転移の有無は予後に関係ない」としており、山口ら<sup>4)</sup>は「60歳以下、T1以下、N0で5年生存率に有意差あり。腫瘍径、生検は予後に関係ない」としている。統一見解はないが、予後の良い条件は進行していないこととしてよいであろうと思われる。自験例は年齢を除くといずれの条件でも予後の良い群に入っていた。

FDG-PETによる食道原発悪性黒色腫の診断については、一つの施設で経験する症例が少ないため感度、特異度、正診率などについて検討した報告はないが、生物学的に同等と思われる皮膚悪性黒色腫の転移巣の検出についての各画像検査の比較検討で、感度と特異度は、FDG-PETが92%と100%、CTが92%と76%、Gaシンチが50%と100%、骨シンチが0%と89%<sup>17)</sup>と報告されており、他の検査に比べFDG-PETは優れていると考えられる。また、80mm<sup>3</sup>以上の体積のあるリンパ節転移は高感度に検出できるといわれており<sup>18)</sup>、悪性黒色腫のリンパ節転移の診断にはFDG-PETは有用であると思われる。また、部位的に同等である食道癌のリンパ節転移の診断についても、感度、特異度、正診率はFDG-PETが77.8%、92.9%、84.4%、CTが61.1%、71.4%、65.6%と、FDG-PETが優れている<sup>19)</sup>。以上のことから、食道原発悪性黒色腫のリンパ節転移の診断にもFDG-PETは有用と思われる。

FDG-PETにCTを組み合わせたPET/CTは、FDG-PETの「質的診断に強いが解剖学的部位診断に弱い」という性質と、CTの「部位診断に強いが形状とサイズのみが質的診断の手がかりである」という性質に関して、双方の利点と欠点を補い合うことができる非常に有用な検査である。自験例でも縦隔内のリンパ節転移という質的にも部位的にも診断が難しい病変の評価にPET/CTは有用であった。

一方、局所の深達度や浸潤など詳細な解剖学的状況を描出する能力はFDG-PETは造影CTやEUSに比べ劣っている。前述の予後の良い条件の

**Table 1** Reported cases of primary malignant melanoma of esophagus diagnosed by FDG-PET or PET/CT

No.	Author	Age	Sex	Modarity	Preoperative diagnosis	Surgery	Postoperative diagnosis	Outcome
1	Ono (2005) <sup>5)</sup>	59	M	FDG-PET	N0	radical resection	N0	NA
2	Kakudo (2006) <sup>6)</sup>	44	M	FDG-PET	Right kidney meta	inoperable		dead 7M
3	Mitsuno (2006) <sup>7)</sup>	63	M	FDG-PET	N1	radical resection	N1	alive 1y
4	Our case	75	M	PET/CT	N0	radical resection	N0	alive 1y

NA : not available, N0 : negative for lymph node metastasis, N1 : positive for regional lymph node metastasis

うち、リンパ節転移、遠隔転移の診断に関してはFDG-PETは有用であるが、腫瘍径、深達度に関しては有用性は低く、正確な術前診断には造影CTやEUSが必要となる。自験例は術前の造影CTで気管や大動脈など周囲臓器への浸潤は認めていない。

FDG-PET, PET/CTによる食道原発悪性黒色腫の診断についての報告は自験例を含めて4例<sup>5)~7)</sup>であった(**Table 1**)。そのうち、2例はリンパ節転移陰性と診断し、1例は1群リンパ節転移陽性の診断で手術を行っている。他の1例は右腎転移の診断で非手術となった。いずれも報告例でもFDG-PET, PET/CTは食道原発悪性黒色腫の治療方針の決定に有用であったと思われる。

今後、FDG-PET, PET/CTはその普及に伴い、食道悪性黒色腫の術前診断に広く活用されるようになると思われる。食道悪性黒色腫の術前評価に関してもデータが蓄積されてくるものと考えられる。

## 文 献

- 1) Chalkiadakis G, Wihlm JM, Morand G et al : Primary malignant melanoma of the esophagus. *Ann Thorac Surg* **39** : 472—475, 1985
- 2) 嶋田 鼎, 五十嵐渉, 堀野 豊ほか : 消化管悪性黒色腫わが国報告例の検討. *外科治療* **80** : 1213—1222, 1999
- 3) 庄村 遊, 村林紘二, 林 仁庸ほか : 食道原発悪性黒色腫の1例. *日臨外医会誌* **56** : 544—548, 1995
- 4) 山口智弘, 塩飽保博, 小出一真ほか : 食道原発悪性黒色腫の1例と本邦報告例(193例)の検討. *日消誌* **101** : 1087—1094, 2004
- 5) 小野敏嗣, 鴨志田敏郎, 落合敏広ほか : PETがステージ診断に有効であった食道悪性黒色腫の1例. *Prog Dig Endosc* **67** : 64—65, 2005
- 6) 角道祐一, 吉岡孝志, 野口三太郎ほか : Weekly Paclitaxel療法が奏効した食道原発悪性黒色腫の1例. *癌と化療* **33** : 969—972, 2006
- 7) 光野雄三, 愛甲 丞, 山田和彦ほか : 食道原発悪性黒色腫. *内科* **98** : 912—916, 2006
- 8) Allen AC, Spitz S : Malignant melanoma. A clinicopathological analysis of the criteria for diagnosis and prognosis. *Cancer* **6** : 1—45, 1953
- 9) Nakamoto Y, Perdomo JA, Tanaka N et al : Primary malignant melanoma of the esophagus : report of a case successfully treated with pre- and post operative adjuvant hormone-chemotherapy. *Jpn J Clin Oncol* **28** : 758—761, 1998
- 10) Sunagawa H, Nishimaki T, Shimoji H et al : Primary malignant melanoma of the esophagus successfully treated by an esophagectomy followed by systemic chemotherapy. *Esophagus* **2** : 33—37, 2005
- 11) 河野康一, 村上昌雄, 崔 秉哲ほか : 術後局所再発・転移に対して放射線治療・化学療法が奏効した食道悪性黒色腫の1例. *癌の臨* **43** : 459—465, 1997
- 12) Sabanathan S, Eng J, Pradhan GN : Primary malignant melanoma of the esophagus. *Am J Gastroenterol* **84** : 147—148, 1989
- 13) 田中正喜, 篠藤満亮, 山本弘幸ほか : 食道悪性黒色腫の1例と本邦報告例の予後に関する考察. *臨外* **46** : 1017—1022, 1991
- 14) 岩瀬博之, 細田誠弥, 國井康弘ほか : 原発性食道悪性黒色腫の1例. *消外* **21** : 1793—1796, 1998
- 15) Volpin E, Sauvanet A, Belghiti J et al : Primary malignant melanoma of the esophagus : a case report and review of the literature. *Dis Esophagus* **15** : 244—249, 2002
- 16) 野見武男, 阪口晃行, 山田行重ほか : 食道悪性黒色腫の1例. *日外科系連会誌* **29** : 43—47, 2004
- 17) 深川修司 : FDG-PETによるメラノーマ転移巣の描出. *臨皮* **57** : 98—102, 2003
- 18) Wagner JD, Schauwecker DS, Davidson D et al : FDG-PET sensitivity for melanoma lymph node metastases is dependent on tumor volume. *J Surg*

Oncol 77 : 237—242, 2001

放 52 : 404—409, 2007

19) 織内 昇, 加藤広行, 船津幸夫ほか: 食道癌. 臨

### A Case of Primary Malignant Melanoma of the Esophagus Successfully Diagnosed by Positron Emission Tomography/CT

Yoshito Okada, Tetsuya Abe, Toshiyuki Arai, Satomi Saeki,  
Takashi Hiromatsu, Keiji Aizu, Akihumi Nakagawa, Eiji Higaki,  
Kohei Yamauchi and Syunpei Yokoi  
Department of Surgery, Anjo Kosei Hospital

A 75-year-old man with a pigmented elevated polypoid lesion in the middle thoracic esophagus recognized at an annual health check up was diagnosed with malignant esophageal melanoma based on histological examination of endoscopic biopsy specimens. Though PET/CT showed some small lymph nodes in the mediastinum, no accumulation of tracer was found in these lymph nodes except for the primary lesion, and the tumor was diagnosed as primary malignant esophageal melanoma without lymph node involvement. Because PET/CT showed no lymph node metastasis, a radical operation was thought useful and the man underwent subtotal esophagectomy and proximal gastrectomy via right thoracotomy and laparotomy with three-field lymph node dissection. Microscopic findings of the resected specimen confirmed the diagnosis of malignant melanoma. The depth of invasion was the submucosal layer. As diagnosed by preoperative PET/CT, dissected lymph nodes were negative for metastasis dissemination. No adjuvant chemotherapy was done. In 12-month postoperative follow-up, no evidence of recurrence or metastasis has been found. Primary malignant esophageal melanoma is rare and deadly, with no established treatment, but the prognosis of early-stage patients has been reported improved, making preoperative staging evaluation is very important in the treatment strategy for this disease.

**Key words** : malignant melanoma, esophagus, PET/CT

[Jpn J Gastroenterol Surg 41 : 1565—1570, 2008]

**Reprint requests** : Yoshito Okada Department of Surgery, Anjo Kosei Hospital  
28 Higashi-Hirokute Anjocho, Anjo, 446-8602 JAPAN

**Accepted** : February 20, 2008