症例

長期生存中の高齢者直腸平滑筋肉腫の1例

大阪市立総合医療センター消化器外科

谷 村 慎 哉 山 崎 修 東 野 正 幸
藤 本 泰 久 水 上 健 治 松 山 光 春
堀 井 勝 彦 福 長 洋 介 田 口 伸 一
藤 田 みゆき

An Aged Case of Leiomyosarcoma of the Rectum with Long Term Survival

Shinya TANIMURA, Osamu YAMAZAKI, Masayuki HIGASHINO,
Yasuhisa FUJIMOTO, Kenji MIZUKAMI, Mitsuharu MATSUYAMA,
Katsuhiko HORII, Yosuke FUKUNAGA, Shinichi TAGUCHI
and Miyuki FUJITA

Department of Surgery, Osaka City General Hospital

症例は下血を主訴とする80歳の女性。直腸指診で肛門縁より3cmの直腸前壁から左側壁にかけて表面平滑な比較的軟らかい腫瘤を触知し、大腸内視鏡下生検でleiomyosarcomaと診断された。腹会陰式直腸切断術を施行したところ、8.0×7.0×5.0cmの管外性に発育する腫瘍で、空洞を有し瘻孔を介して直腸粘膜と交通していた。なお粘膜面には潰瘍形成がみられた。病理組織学的所見では紡錘形の腫瘍細胞が束状配列をなして粘膜下層から固有筋層を越えて増殖しており、細胞密度が高く核異型も著明で核分裂像も散見された。本例は術後5年経過した現在、無再発生存中であり、特に高齢者の予後不良な本疾患では稀な症例と考えられた。

索引用語：直腸平滑筋肉腫 (leiomyosarcoma of the rectum)、管外性発育 (extraluminal growth)、腹会陰式直腸切断術 (abdominoperineal amputation of the rectum)

緒 言

直腸平滑筋肉腫は比較的稀な疾患で本邦ではこれまで170例余りの報告をみるにすぎない。今回われわれは内視鏡下生検で術前診断がえられ5年間無再発生存中の直腸平滑筋肉腫の1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：80歳，女性。

主 訴：下血。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：60歳時より高血圧で内服治療中。

現病歴：平成6年1月下旬より鮮紅色の下血が出現した。近医での直腸指診で直腸内に腫瘤を指摘され、精査目的で2月7日に当院を受診した。初診時の直腸指診では肛門縁より3cmの直腸前壁から左側壁にかけて表面平滑な比較的軟らかい腫瘤を触知した。大腸内視鏡下生検でleiomyosarcomaと診断されたため、手術目的で2月15日に入院となった。

入院時現症：身長150cm，体重41kg。血圧160/

85mmHg, 脈拍76/分, 結膜には軽度の貧血を認めるも黄疸なし。胸部理学所見にてLevineⅢ度の全収縮期雑音を認めたが, 腹部は平坦, 軟で腫瘍は触知せず圧痛もみられなかった。直腸指診では肛門縁より3cmの直腸前壁から左側壁にかけて表面平滑で比較的軟らかい腫瘍の下縁を触知し, 可動性は不良であった。

入院時検査成績:末梢血液像で赤血球 $318 \times 10^4/\text{mm}^3$, ヘモグロビン9.9g/dlと軽度の貧血を認めたが, その他の血液生化学検査値には異常はみられず, CEA, AFP等の腫瘍マーカーも正常範囲内であった。

注腸造影所見:直腸RaからRbの左前壁を中心に表面平滑で巨大な腫瘍を認めた (Fig. 1)。

大腸内視鏡所見:直腸前壁から左側壁にかけて巨大な隆起性病変を認めた。表面は比較的平滑であるが, 腫瘍の中心付近では白苔を伴う潰瘍がみられた (Fig. 2)。生検材料の病理組織診断はleiomyosarcomaであった。

骨盤CT所見:骨盤腔内に最大径8cm大の周囲組織との境界明瞭な腫瘍が認められた。腫瘍は子

宮を腹側に圧排しているが, 境界のfat layerは保たれていた (Fig. 3)。

骨盤MRI所見:T₁強調画像でCTと同様に周囲組織との境界が明瞭でやや高信号を呈する $8 \times 8 \times 7$ cm大の腫瘍として描出された。この腫瘍の頭側に径3cm大の一部高信号の部分を含むが大部分は低信号を呈する円形腫瘍を認め, 卵巣囊腫を疑った (Fig. 4)。

以上より直腸原発の平滑筋肉腫と診断し, 平成

Fig. 2 Fibercolonoscopy reveals a giant elevated lesion with smooth surface at the left anterior wall of the rectum (left), that had an ulcer with white coat in the center (arrow).

Fig. 1 Barium enema shows compression of left anterior wall of the rectum by an extrinsic giant mass (arrow).

Fig. 3 Computed tomography shows a well-defined mass in the pelvic cavity.

Fig. 4 MR images show a heterogeneous and hyperintense mass in T1 weighted imaging. Central part of the mass has scattered hypointense regions. An ovarian cyst at the cranial side of the mass is revealed.

Fig. 5 Macroscopic findings of the resected specimen shows submucosal tumor with ulceration (above). Cavity of the tumor (arrow) is connected by a fistulous tract to the intestinal lumen (arrow head).

6年3月4日に全身麻酔下に手術を施行した。

手術所見：正中切開で開腹すると左卵巣嚢腫を認めたが腹水はなく、肝転移や腹膜播種もみられなかった。腫瘍は手拳大でRaを中心に一部Rbの前壁および左側壁から管外性に発育しているが被膜を有し周囲組織への浸潤はみられず、所属リンパ節の腫大は明らかでなかった。そこで卵巣嚢腫を切除した後に、腹会陰式直腸切斷術を施行した。

摘出標本肉眼所見：腫瘍は8.0×7.0×5.0cm大で正常粘膜に覆われた粘膜下腫瘍の形態をとっており、潰瘍が2カ所にみられた。腫瘍の断面では中心部に空洞形成がみられ、この空洞は瘻孔を介して潰瘍と交通していた (Fig. 5)。

病理組織学的所見：紡錘型の腫瘍細胞が束状に配列し、これらの細胞束が交錯しながら粘膜下層から固有筋層を越えて増殖していた。核クロマチンが増量し核分裂像も散見され(10個以上/高倍率10視野)、細胞密度も高く核異型も著明であった。腫瘍中心部の空洞形成部付近では比較的広範な壞

Fig. 6 Microscopic finding shows spindle-shaped tumor cells bundle-pallisading and multifying over the proper muscular layer. (HE×400)

死ならびに好中球浸潤がみられた (Fig. 6)。所属リンパ節への転移はみられなかった。

術後経過は良好で、第24病日に軽快退院となった。術後5年を経過した現在、無再発生存中である。

考 察

直腸平滑筋肉腫は1908年にExner¹⁾によって初めて記載され、Andersonら²⁾によって直腸癌2,000~3,000例に1例の割合で直腸平滑筋肉腫を認め、さらにDiamonteら³⁾、Somervellら⁴⁾は全直腸腫瘍に占める平滑筋肉腫の頻度はそれぞれ0.1%、0.08%と述べている。本邦では岩井ら⁵⁾の報告以来、報告例は増加しているものの170例余りにすぎず比較的稀な疾患と思われる。

吉村ら⁶⁾の本邦報告174例の集計によると、発症は男性111例 (63.8%)、女性63例 (36.2%) と男性に多く、平均年齢は55.4±12.6歳、女性59.1±10.9歳であった。占拠部位としてその89%が肛門縁より6cm以内に存在し直腸指診で触知可能な例が多く、腫瘍の大きさは2cm以下のものから骨盤腔内を占める大きさのものまであり多彩であった⁷⁾。腫瘍の発育様式に関しては管内型、管外型、ダンベル型に分類され、潰瘍、瘻孔、空洞の形成もしばしば見られる⁸⁾。主症状は出血、血便が最も多く、ついで排便困難、疼痛、腫瘍の順で、その他排尿障害、裏急後重、肛門部不快感等であった。術前検査は注腸造影、CT、MRI、腹部血管造影等が考慮されるが、内視鏡下生検が最も重要と考え

られる。手術術式では123例に直腸切断術, 36例に腫瘍摘出術が施行され, その他は骨盤内臓全摘術7例, 人工肛門造設術6例, 直腸切除術2例であった⁶⁾。本症では肝や肺などへの血行性転移に加えてリンパ節転移も少なからず認められる。したがって腫瘍摘除のみでは再発率が高くしかも再発例の中にはより組織学的悪性度を増すものもあるため⁹⁾, 直腸癌に準じたりんパ節郭清を含めた根治手術が必要である¹⁰⁾。遠隔成績は5年生存率21~30%とされ¹¹⁾予後の悪い疾患で, 術後5年以降の再発死亡例もあり⁸⁾, 自験例でも今後厳重なfollow upが必要と考えている。平田らの報告⁹⁾でも本邦の5年以上生存例はわずか2例だけで, 50歳台の症例が多いなか高齢者の予後は特に悪く, 80歳以上の手術報告例¹²⁾¹³⁾はいずれも術後2年以内に死亡しており, 長期生存のえられている本例は稀な症例と考えられる。

結 語

内視鏡下生検で術前診断がえられ5年間無再発生存中の直腸平滑筋肉腫の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

参考文献

- 1) Exner A : Uber nichtmelanotische Sarkomedes. Med Klin Berlin 4 : 858-861, 1908
- 2) Anderson PA, Deckerty MB, Buic LA : Myomatous tumor of the rectum (Leiomyomas and myosarcomas). Surgery 28 : 642-650, 1950
- 3) Diamonte M, Bacon HE : Leiomyoma of the rectum. report of a case. Dis Colon and Rectum 10 : 347-351, 1961
- 4) Somervell JL, Mayer PF : Leiomyoma of the rectum. Brit J Surg 58 : 144-146, 1971
- 5) 岩井 実, 菅谷良男 : 直腸に発生せる平滑筋肉腫の1例. 臨消病会誌3 : 159-160, 1955
- 6) 吉村玄浩, 良河光一, 板谷宏淋他 : 巨大直腸平滑筋肉腫の1例—本邦における手術例174例の集計—。外科59 : 1805-1808, 1997
- 7) 吉川周作, 藤井久男, 山本克彦他 : 同時性肝転移を伴った直腸平滑筋肉腫の1切除例. 外科診療 32 : 133-136, 1990
- 8) Onye EA, Roger RD, Louis HW, et al : Leiomyosarcoma of the small and large bowel. Cancer 42 : 1375-1384, 1978
- 9) 平田俊治, 佐々木襄, 井上邦典他 : 直腸平滑筋肉腫の1例および本邦集計83例の考案. 日臨外会誌 46 : 1169-1175, 1985
- 10) 田所文彦, 横田和彦, 佐藤光史他 : 術後5年以上生存した直腸平滑筋肉腫の1手術例. 北里医23 : 288-291, 1993
- 11) Sanders RJ : Leiomyosarcoma of the rectum : Report of the six cases. Ann Surg 154 (Suppl) : 150-154, 1961
- 12) 石田孝雄, 小畑 満, 永合正浩他 : 直腸原発平滑筋肉腫の1例. 外科診療38 : 1105-1109, 1996
- 13) 津田基晴, 池谷朋彦, 深原一晃他 : 86歳女性に発症した巨大な直腸平滑筋肉腫の1例. 外科59 : 1388-1390, 1997