症例報告

胃癌に合併した胃グロムス腫瘍の1例

高橋 和裕 清水 英男* 篠崎 伸明

湘南厚木病院外科

同 病理診断科*

胃癌にグロムス腫瘍の合併を認めたまれな症例を経験したので報告する。症例は63歳の男性で、腹部膨満感を主訴に受診し、幽門狭窄と診断され、精査加療目的に入院となった。腹部CTでは幽門部に腫瘤を認め、これにより胃内腔は狭窄し、胃の拡張を伴っていた。この腫瘤に接した口側に強く造影される内部不均一な類円形の粘膜下腫瘍を認めた。腹部超音波検査で胆石を認めた。上部内視鏡検査では幽門部に腫瘤を認め、生検にて胃癌と診断された。この口側に潰瘍形成を伴わない粘膜下腫瘍を認めた。胃癌による幽門狭窄、胃粘膜下腫瘍、胆石症の術前診断にて幽門側胃切除術、胆嚢摘出術を行った。肉眼的には腫瘤と粘膜下腫瘍は一塊となり3型腫瘤を呈していた。その断面の肛門側腫瘤は白色硬で、口側の粘膜下腫瘍は褐色軟であった。病理組織学診断で白色腫瘤は胃癌であり、褐色の粘膜下腫瘍は、グロムス腫瘍であった。

はじめに

グロムス腫瘍は、四肢、とくに爪床に好発する軟部腫瘍で、その構成細胞はnormal glomus body (グロムス小体)の平滑筋細胞に似ている¹⁾。また四肢末梢以外では、骨、胃、大腸、気管、膈、子宮頸部、腸間膜に、まれに発生することが知られている²⁾。今回、幽門狭窄にて発症した胃癌にグロムス腫瘍を合併したまれな症例を経験したので報告する。

症 例

症例：63歳、男性

主訴：腹部膨満感

既往歴：特記なし。

家族歴：特記なし。

現病歴：2週間前より出現した腹部膨満感を主訴に2011年2月当院消化器内科を受診した。上部下部内視鏡検査が行われ、幽門狭窄と診断された。しかし残渣が多く内視鏡所見は不明瞭で、生検も行われていたが病理結果は再生上皮のみであった。下部内視鏡所見は憩室を認めるのみで、検査前の前処置は通常に行われていた。内視鏡検査翌日、外科に紹介受診となり、精査加療目的に同日入院となった。

入院時現症：身長165cm、体重68kg、眼瞼結膜に貧血なく、眼球結膜に黄疸を認めず。上腹部の膨隆を認めるも、腹部に自発痛や圧痛は認めなかった。

入院時血液検査所見：WBC 6,800/ μ l, Hb 13.6g/dl, PLT 25.8万/ μ l, AST 18IU/l, ALT 13IU/l, T-Bil 0.8mg/dl, BUN 18.5mg/dl, Cre 1.22mg/dl, CEA 1.6ng/ml, CA19-9 19.1U/ml。軽度の腎機能障害を認めたが、それ以外には特に異常を認めなかった。腫瘍マーカーのCEAとCA19-9はいずれも正常範囲内であった。

Fig. 1 Abdominal CT shows the gastric dilatation due to the pyloric mass. A submucosal oval mass was also observed next to the pylorus mass and was enhanced strongly (white arrow).

Fig. 2 The pyloric tumor was diagnosed as tubular adenocarcinoma by biopsy. The submucosal tumor without ulceration was also observed at the oral side of the pyloric tumor.

入院時腹部CT所見：幽門部に腫瘍形成を認め、これにより胃内腔は狭窄し、胃の拡張を伴っている。この腫瘍に接した口側に限局し強く造影される内部不均一な類円形の粘膜下腫瘍を認めた（Fig. 1）。

腹部超音波検査：胃幽門部の壁肥厚を認めた。また、胆嚢内に可動性のある19mm, 20mm大の結石を認めた。

上部消化管造影検査所見：幽門部後壁に3cm大の隆起性病変を認めた。ガストログラフィンの十二指腸への排出は認めず完全狭窄と診断した。このため胃管を挿入し減圧を行い上部内視鏡検査を再度行った。

上部内視鏡所見：幽門部に腫瘍を認め狭窄しスコープは通過しなかった。生検にてTubular adenocarcinoma (tub2)と診断された。この腫瘍の口側に潰瘍形成を伴わない粘膜下腫瘍を認めた（Fig. 2）。

Fig. 3 Macroscopic findings show the type 3 tumor is 2.8×2.5 cm in diameter at the antrum (white arrow).

Fig. 4 On the longitudinal cut surface of the type 3 tumor, the distal portion is white firm and the oral portion is brown soft.

以上の所見より胃癌幽門狭窄，胃粘膜下腫瘍，胆石症の術前診断にて幽門側胃切除術 D2 郭清，胆嚢摘出術を行った。

切除標本：前庭部から幽門輪にかけて 2.8×2.5 cm 大の 3 型腫瘍を認めた (Fig. 3)。断面ではその肛門側部分 1.5×2.5 cm 大は白色硬であり，口側部分，径 1.5 cm 大は褐色で比較的軟らかい (Fig. 4)。

病理組織学的検査所見：白色部分は組織学的には adenocarcinoma, $\text{por2} > \text{tub2}$, depth ss, infy, ly2, v2 であった (Fig. 5)。carcinoma のリンパ節転移を認めた (3/15)。以上の所見より胃癌に関しては T3, N2, M0, Stage IIIA と診断した。褐色部分は固有筋層内と一部粘膜下組織内に位置していた。そこには組織学的に，比較的小型で類円形の核，淡明ないしピンク色の胞体を持つ細胞が密に増殖していた。それらの間にはスリット状の血管が豊富に存在した。部分的には血管周囲の硝子化した結合組織も介在し

Fig. 5 Histologically the white portion was diagnosed as gastric carcinoma which was composed of poorly and moderately differentiated adenocarcinoma. This figure shows moderately differentiated tubular adenocarcinoma in the mucosa. Hematoxylin and eosin (H&E) stain.

Fig. 6 Glomus tumor. Small, round cells with lightly eosinophilic or pale cytoplasm cluster around and between gaping vascular spaces. The nuclei were round to slightly oval. H&E stain.

ていた (Fig. 6). それらの細胞は免疫組織学的染色法で, smooth muscle actin (以下, SMA と略記) が陽性であった (Fig. 7). desmin は陰性であった (Fig. 8). さらに c-kit, CD34, S-100 蛋白, CD56 はすべて陰性であった. 以上の所見より, 褐色部分は carcinoma とは別ものであり, グロムス腫瘍と診断した. 胃癌と胃グロムス腫瘍は膠原線維により完全に分離されており, 重複腫瘍と診断した (Fig. 9).

病理診断後, 四肢および爪床をあらためて診察を行うも, 腫瘍や圧痛は認めなかった. 術後経過は良好で, 術後 12 日目に退院となった. 術後, 補助化学療法として TS-1 投与を行っている.

考 察

“グロムス腫瘍は間葉系腫瘍で, その構成している細胞はグロムス小体の特殊な平滑筋細胞によく似た細胞である”と定義されている¹⁾. グロムス小体は動静脈吻合部の血管周囲に上皮様細胞が配列した特殊な構造で, 指趾の皮膚や爪床に最も多く存在し, 温度の変化に感受性を有して血流を調節する. このた

Fig. 7 Immunostains for smooth muscle actin (SMA) reveal strong cytoplasmic positivity in glomus cells. Immunostain for SMA.

Fig. 8 The glomus cells do not express desmin on immunostain.

め、グロムス腫瘍の大部分は四肢、とくに爪床に多く発生し、数 mm 径の小さな赤紫色の病巣をつくり、しばしば発作性の激痛を認める³⁾。多発病変を約 10% の患者に認められる¹⁾。また、グロムス小体が乏しい、もしくは存在しないであろう部位にも、グロムス腫瘍は発生する。そのまれな部位として骨、胃、大腸、気管、膣、子宮頸部、腸間膜が挙げられる²⁾。

胃に発生するグロムス腫瘍は、1948 年に De Busscher により初めて報告されている⁴⁾。本邦では 1962 年の庄司らの報告が初めてである⁵⁾。以後、2009 年までに会議録を除きこれまで 81 例が報告されている⁶⁾。胃癌と合併した胃グロムス腫瘍は非常にまれで、これまで 1971 年に山際ら、1998 年に福田らが報告して以来、本例で 3 例目と思われる⁷⁾⁸⁾。医学中央雑誌で「胃グロムス腫瘍」、「胃癌」をキーワードに 1983 年から 2011 年まで検索したところ福田らの報告のみが検索され、福田らは第 1 例目の山際らの報告を引用し、福田ら自身を第 2 例目と報告している⁸⁾。

山際らの例では、幽門小彎に胃癌を認め、その十二指腸側にグロムス腫瘍を認めている⁷⁾。福田らの例では、前庭部小彎前壁に胃癌を認め、前庭部大彎後壁にグロムス腫瘍を認めている⁸⁾。本症例では、前庭部から幽門の大彎に一塊となる 3 型腫瘤を認め、その口側部分がグロムス腫瘍で、十二指腸側部分が胃癌であった。胃癌とグロムス腫瘍は膠原線維により完全に分離されており、重複腫瘍と診断した。腫瘍

Fig. 9 There are collagen fibers between gastric carcinoma on the left side and glomus tumor on the right side. They distinguished the two different tumors completely. H&E stain.

相互間に明らかな関連性はないものと思われた。

阿部らは本邦における 60 例の胃グロムス腫瘍を検討し、発症平均年齢 49.5 歳、男女比は 2 : 3 とやや女性に多いと報告している。また、自覚症状としては、心窩部痛、上腹部痛、腹痛などが 31.0%、下血、タール便、貧血が 20.7% で全く症状のないものは 9.2% で胃グロムス腫瘍の特徴的臨床症状はなかったと報告している⁹⁾。本症例は腹部膨満感が主訴であったが、CT、内視鏡、手術所見より、この症状をもたらした幽門狭窄は胃癌によるものであり、胃グロムス腫瘍による症状は全くなかったと思われた。発生部位は幽門前庭部が最も多く 78.0% で、そのなかでも前壁がもっとも多く (40.9%)、次いで大彎 (29.5%)、後壁 (22.7%)、小彎 (6.8%) と報告されている⁹⁾。本症例の病変は幽門前庭部大彎に位置していた。大きさに関しては、四肢末梢に発生するグロムス腫瘍は有痛性の腫瘍として発見され、大部分が 0.5~2cm の大きさで治療されている¹⁰⁾。これに対し、胃グロムス腫瘍では最長径の平均は 2.9cm で 2~5 cm の大きさが 82.7% と大部分を占めており、四肢末梢のグロムス腫瘍に比べ、胃グロムス腫瘍は大きい傾向があると報告されている⁹⁾。本症例ではグロムス腫瘍部分の大きさは 1.5cm であり、胃癌による幽門狭窄の症状が出現していなければ、この時期では発見されなかったと思われる。

術前診断としては、粘膜下腫瘍と診断されているものが 70.7% と多く、術前生検にてグロムス腫瘍と診断されていた症例は潰瘍形成を伴っていた 6.7% のみで術前診断は困難であると報告されている⁹⁾。

造影 CT は特徴的で、本症例において、接する胃癌と比較しても明らかに強く造影されている。Kim らもグロムス腫瘍の豊富な血管新生のため強い造影効果が生じると説明し、他の粘膜下腫瘍との鑑別に有用であると報告している¹¹⁾。

確定診断はその特徴的な組織像にて行われるが、免疫組織染色は補助診断に有用である。胃グロムス腫瘍は四肢末梢のグロムス腫瘍と同様に SMA 陽性で desmin 陰性であり、GIST と異なり c-kit は陰性と報告されている¹²⁾。本症例でもグロムス腫瘍部位は、SMA 陽性、desmin 陰性、c-kit 陰性にすべて合致しており、胃グロムス腫瘍と確定診断した。

胃グロムス腫瘍は粘膜下腫瘍の形態を呈するため、その治療に関しては、胃粘膜下腫瘍の治療方針に従う¹³⁾。胃グロムス腫瘍は良性腫瘍であり、ごくまれに報告される悪性化例でもリンパ節転移の報告がないことを考慮すると、手術を行う場合は部分切除術が適切な術式と考えられる⁶⁾。本症例では、併存する胃癌のため幽門側胃切除術 D2 郭清を行った。郭清した一部のリンパ節内に carcinoma の転移は認められたが、すべての郭清したリンパ節内においてグロムス腫瘍の転移は認められなかった。

文献

- 1) Folpe AL. Glomus tumors. In: Fletcher CDM, Unni K, Mertens F, editors. World Health Organization Classification of Tumors. Pathology and Genetics of Tumours of Soft Tissue and Bone. Lyon: IARC Press; 2002. p. 136-7.
- 2) Weiss SW, Goldblum JR. Perivascular tumors. SOFT TISSUE TUMORS. Philadelphia: MOSBY ELSEVIER; 2008. p. 751-67.
- 3) 橋本 洋. 軟部腫瘍. グロムス腫瘍/血管周皮腫. 向井 清, 真鍋俊明, 深山正久編. 外科病理学. 東京: 文光堂; 2006. p. 1550.
- 4) De Busscher G. Les anastomoses arterioveineuses del estomac. Acta Neerl Morph Norm Pathol. 1948;6:87-105.
- 5) 庄司忠実, 川嶋 聡, 奈良坂俊樹, 佐藤 進, 河村 基, 的場直矢, ほか. 胃 Glomus 腫瘍の 1 例. 東北医学雑誌. 1962; 65:248-53.
- 6) 西澤弘泰, 小泉直樹, 有光竜樹, 小松原隆司, 岡ゆりか, 山田 元. 腹腔鏡補助下胃部分切除術を施行した胃 glomus 腫瘍の 1 例. 外科. 2010;72(4):413-6.
- 7) 山際裕史, 竹内藤吉, 大西武司, 稲守重治, 堀 英穂. 胃の腺癌と Glomus tumor の合併例. 臨床外科. 1971;26(3):531-3.
- 8) 福田和馬, 浅野博昭, 大谷 裕, 宮口直之, 西 英行, 間野正之, ほか. 胃癌を伴った胃グロームス腫瘍の 1 例: 本邦報告例の文献的考察. 岡山医学会雑誌. 1998;110:107-14.
- 9) 阿部 幹, 遠藤幸男, 森山 厚, 木村卓也, 小野友久, 井上 仁, ほか. 血液透析患者に発症した胃 glomus 腫瘍の 1 例. 日本臨床外科医学会雑誌. 1994;55(6):1470-4.
- 10) Tsuneyoshi M, Enjoji M. Glomus Tumor: A Clinicopathologic and Electron Microscopic Study. Cancer. 1982;50:1601-7.
- 11) Kim JK, Won JH, Cho YK, Kim MW, Joo HJ, Suh JH. Glomus tumor of the stomach: CT findings. Abdom Imaging. 2001; 26:303-5.
- 12) Miettinen M, Paal E, Lasota J, Sobin LH. Gastrointestinal glomus tumors: A clinicopathologic, immunohistochemical, and molecular genetic study of 32 cases. Am J Surg Pathol. 2002;26:301-11.
- 13) 日本癌治療学会, 日本胃癌学会, GIST 研究会編. GIST 診療ガイドライン. 2010 年 11 月改定第 2 版. 東京: 金原出版; 2010.

CASE REPORT

A Case of Glomus Tumor of the Stomach Coexisting with Gastric Cancer

Kazuhiro Takahashi, Hideo Shimizu* and Nobuaki Shinozaki

Department of Surgery, Shonan Atsugi Hospital

Department of Pathology, Shonan Atsugi Hospital*

We report a rare case of glomus tumor of the stomach coexisting with gastric cancer. A 63-year-old man visited our hospital because of a sensation of abdominal fullness and was admitted with a diagnosis of pyloric stenosis for evaluation. Abdominal CT showed a mass at the pylorus which caused stenosis of the gastric lumen and induced gastric dilatation. There was a submucosal tumor observed at the oral side of the pylorus mass. The submucosal oval mass was strongly and heterogeneously enhanced. Cholelithiasis was diagnosed by abdominal sonograph. The pyloric tumor was diagnosed as gastric carcinoma by biopsy. The submucosal tumor without ulceration was also observed at the oral side of the cancer by endoscopy. Gastric cancer with pyloric stenosis, submucosal tumor and cholelithiasis were diagnosed preoperatively. Distal gastrectomy and cholecystectomy were performed. On the longitudinal cut surface of the type 3 tumor, the distal portion was white firm and the oral portion was brown soft. Pathologically the white portion was diagnosed as carcinoma and the brown one was glomus tumor.

Key Words: glomus tumor, advanced gastric cancer

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2012;45(6):590-597]

Reprint requests: Kazuhiro Takahashi Department of Surgery, Higashi Totsuka Memorial Hospital
548-7 Shinano-cho Totsuka-ku, Yokohama, 244-0801 JAPAN

Accepted: January 25, 2012