症例報告

術前検査で間葉系腫瘍を疑い腹腔鏡下胃局所切除術を施行した
胃 hamartomatous inverted polyp の 1 例

磯辺 太郎¹⁾ 秋葉 純²⁾ 橋本 宏介¹⁾ 木崎 潤也¹⁾
 的野 吾¹⁾ 衣笠 哲史¹⁾ 青柳慶史朗¹⁾ 矢野 博久²⁾
 赤木 由人¹⁾

¹⁾久留米大学医学部外科学講座²⁾久留米大学医学部病理学講座

症例は 26 歳の男性で、心窩部痛を主訴に近医を受診した。上部消化管内視鏡検査で胃穹窿部の粘膜下腫瘍を指摘され当科紹介となった。超音波内視鏡検査にて第 3 層内に不均一なエコーレベルの腫瘍を認め、内部に小さな低エコー域の混在を認めた。超音波内視鏡下穿刺吸引生検を行ったところ、平滑筋への分化を伴う非上皮性腫瘍が疑われ、胃内視鏡ガイド下に腹腔鏡下胃局所切除術を施行した。切除標本では、異型のない粘膜上皮が粘膜筋板の介在を伴い内反するように粘膜下層を主体に見られた。これらの所見より胃 hamartomatous inverted polyp と診断した。

キーワード：hamartomatous inverted polyp, 粘膜下腫瘍様

はじめに

Hamartomatous inverted polyp (以下, HIP と略記) は粘膜下に異所性に腺管の増生を認め、胃内腔に膨張性に発育してポリープ状の形態を示す病変である¹⁾。今回、我々は胃粘膜下腫瘍像を呈し、平滑筋への分化を示す間葉系腫瘍を疑い腹腔鏡下胃局所切除術を施行した胃 HIP の 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：26 歳，男性

主訴：心窩部痛

既往歴：特記すべき事項なし。

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：上記主訴で近医を受診し上部消化管内視鏡検査所見にて胃粘膜下腫瘍を指摘され当消化器病センター紹介受診となった。

入院時現症：眼瞼結膜に貧血なし，眼球結膜に黄疸なし。皮膚や口腔粘膜に色素沈着なし。毛髪・爪甲異常なし。

入院時検査所見：血液・生化学検査異常なし。血液腫瘍マーカー CEA, CA19-9 正常。抗ヘリコバクターピロリ IgG 基準値以下。

Fig. 1 Upper gastrointestinal endoscopy showed an elevated lesion covered with normal mucosa. Erosion and depression were observed at the top of the lesion.

Fig. 2 Endoscopic ultrasonography showed a tumor with a clear border and a small hypoechoic lesion in the third layer of the gastric fundus.

Fig. 3 Microscopy of the fine needle aspiration biopsy specimen. A: HE stain; B: α -smooth muscle actin (+) expression.

上部消化管内視鏡検査所見：穹隆部大彎後壁側に約 20 mm の bridging fold を有する球状の粘膜下腫瘍様病変を認めた。頂部は花弁状に開口していたが、内部より明らかな粘液漏出などはなかった。鉗子触診ではやや硬い印象であった (Fig. 1)。狭帯域光観察 (NBI: narrow image) を併用した拡大内視鏡検査では陥凹部と周辺隆起に腺窩間部の開大した不整のない粘膜模様を認めた。

超音波内視鏡検査 (endoscopic ultrasonography; 以下, EUS と略記) 所見：第 3 層内に不均一なエコーレベルの腫瘤を認めた。腫瘤は頂部にて表面に露出しているように見え、また一部に小さな低エコー域の混在を認めた。筋層との連続性なし。これらの所見では異所性胃腺が疑われた (Fig. 2)。

EUS 下穿刺吸引生検組織所見：標本内に明らかな上皮組織は見られず、短紡錘形から卵円形の細胞が密に見られ、これらの細胞は免疫組織化学染色で α -SMA (+), CD34 (-), S100 (-), c-kit (-) で、介在する mast cell に c-kit が陽性を示した (Fig. 3)。

以上より、術前診断は平滑筋腫などの平滑筋への分化を伴う非上皮性腫瘍が疑われたが、組織量が少なく確定診断に至らず、本人・家族の希望および確定診断をつけるために、2013 年 10 月 10 日腹腔鏡下胃局所切除術を施行した。

手術所見：胃内視鏡を挿入して胃粘膜下腫瘍を確認。穹隆部を脱転し、腫瘍直下を鉗子で把持挙上した。ENDO GIA で仮閉鎖し、胃内視鏡で噴門部と腫瘍の噛込みがないことを確認後 fire した。再度胃内視鏡で

Fig. 4 Microscopy of the surgical specimen revealed an inverted and expansive growth pattern accompanied by muscularis mucosae in the submucosal layer. There were no apparent neoplastic changes in the epithelium. Glands with cystic formation were found located in the deep part of the lesion. Moreover, the lesion contained a dilated gland duct without any atypia and an area of reactive spindle-to-oval-shaped cells (HE staining).

確認しつつ ENDO GIA を挿入し胃を楔状に切離した。

切除標本所見：腫瘍表面は正常粘膜で覆われ、その頂部に発赤調の陥凹を伴っていた。腫瘍径は 17×14×7 mm。

病理組織学的検査所見：病変の最表層を覆う粘膜上皮に腫瘍性的変化は認めず、異形のない粘膜上皮が粘膜筋板の介在を伴い内反するように粘膜下層に見られた。一部では、内腔の拡張する腺上皮が見られ、散在性に短紡錘形の細胞が密に見られた。それらの細胞は免疫組織化学染色で α -SMA (+), CD34 (-), S-100 (-), c-kit (-) で、介在する mast cell に c-kit が陽性を示しており、反応性の筋繊維芽細胞であることが示唆された。組織学的にはいずれの成分も腫瘍性的変化は認めなかった (Fig. 4)。

これらの所見より胃 hamartomatous inverted polyp と診断した。術後経過は良好で、第 11 病日で退院となった。

考 察

1966 年に Allen¹⁾が直腸において、異所性腺管が粘膜下へ逆行性・嚢胞状に発育し腸管内へ突出する形態をとる病変を HIP と報告し、胃でも同様の表現が用いられている。1983 年から 2013 年 12 月までの医学中央雑誌で「胃 hamartomatous inverted polyp」, 「胃過誤腫」をキーワードとして検索 (会議録を除く) した結果、本症例を含め 35 例のみの報告であった (Table 1)^{2)~30)}。年齢はさまざまで、男性 14 例、女性 21 例とやや女性に多い傾向にあった。多くが健康診断時に偶然発見された。

HIP の成因については先天性の組織異常とする説³¹⁾と後天的な炎症を伴う説³²⁾がある。後者の機序とし

Table 1 Reported cases of hamartomatous inverted polyp in Japan

No.	Author	Year	Age	Sex	Chief complaint	Location	Size (mm)	Form	Preoperative diagnosis	Stomach cancer	Treatment
1	Yamada ⁸⁾	1983	51	F	—	U (Post)	28	polyp	SMT	—	EE
2	Yamada ⁸⁾	1983	53	F	Appetite loss	U (Post)	18	polyp	polyp	—	EE
3	Tagawa ⁹⁾	1987	60	F	Bleeding	U (Less)	26	polyp	SMT	—	EE
4	Katou ¹⁰⁾	1989	76	M	—	L	32	SMT	SMT	—	Surgery
5	Takizawa ⁶⁾	1990	48	F	—	U (Less)	25	SMT	SMT	—	Surgery
6	Sugiyama ⁴⁾	1992	15	F	Epigastric ache	U (Gre)	14	SMT	—	—	EE
7	Katou ¹¹⁾	1993	73	M	Anemia	M (Post)	15	SMT	Cyst	+	EE
8	Inoue ¹²⁾	1995	67	M	—	U (Gre)	10	SMT	Ectopic gastric mucosal glands	—	EE
9	Matsuoka ³⁾	1995	39	F	—	U (Ant)	18	polyp	Hamartomatous inverted polyp	—	EE
10	Tada ¹³⁾	1996	68	M	Appetite loss	Anastomosis	70	polyp	polyp	—	Surgery
11	Adachi ¹⁴⁾	1997	75	F	—	U	23	polyp	SMT	—	EE
12	Itou ¹⁵⁾	1998	41	F	Epigastric discomfort	U	23	polyp	—	—	EE
13	Katou ¹⁶⁾	1998	57	M	—	U (Less)	32	polyp	Hyperplastic polyp	—	EE
14	Kubo ¹⁷⁾	2000	21	F	Bleeding	U	—	polyp	—	—	EE
15	Ozawa ¹⁸⁾	2000	40	F	—	U (Gre)	25	SMT	SMT	—	EE
16	Hibino ¹⁹⁾	2002	63	M	—	U (Gre)	28	SMT	Heterotopic pancreas	—	Surgery
17	Umeoka ⁷⁾	2003	41	M	Bleeding	U (Post)	5	SMT	SMT	—	Surgery
18	Aoki ²⁾	2004	43	F	—	U (Post)	28	SMT	—	—	Surgery
19	Hirasaki ⁵⁾	2006	39	F	—	U (Less)	17	SMT	Heterotopic pancreas	+	Surgery
20	Ono ²⁰⁾	2007	59	M	—	U (Post)	—	SMT	SMT	—	EE
21	Odashima ²¹⁾	2008	37	M	—	U (Less)	25	SMT	—	—	EE
22	Tomomatsu ²²⁾	2010	48	M	—	M (Post)	45	SMT	SMT	—	EE
23	Okamoto ²³⁾	2010	59	F	—	U (Ant)	18	polyp	SMT	—	EE
24	Yokosawa ²⁴⁾	2010	74	F	Epigastric discomfort	U (Post)	20	polyp	SMT	—	EE
25	Nakao ²⁵⁾	2011	54	F	—	U	17	polyp	SMT	—	EE
26	Nakao ²⁵⁾	2011	50	F	—	U (Gre)	18	polyp	SMT	—	EE
27	Tamura ²⁶⁾	2011	35	F	—	U (Post)	20	SMT	Cyst/GIST	—	Surgery
28	Matsumoto ²⁷⁾	2011	28	M	Epigastric ache	M (Gre)	20	polyp	Hyperplastic polyp	—	EE
29	Kudou ²⁸⁾	2012	59	F	—	U (Gre)	15	SMT	SMT	—	EE
30	Ageo ²⁹⁾	2012	74	M	Epigastric discomfort	U (Ant)	18	SMT	SMT	—	EE
31	Ageo ²⁹⁾	2012	61	F	—	U (Ant)	15	polyp	SMT	—	EE
32	Kurashita ³⁰⁾	2013	65	F	—	U (Gre)	35	polyp	—	—	EE
33	Kurashita ³⁰⁾	2013	61	M	—	U	8	polyp	—	—	EE
34	Kurashita ³⁰⁾	2013	70	F	—	U (Post)	15	polyp	—	—	EE
35	Our case		26	M	Epigastric ache	U (Gre)	17	SMT	SMT	—	Surgery

SMT=submucosal tumor, EE=endoscopic exision

て、炎症や損傷により二次的に筋板の断裂や脆弱化が生じ、筋板の間隙や菲薄化した部位から胃粘膜の一部や腺管が粘膜下に入り込み、腺管の増生を来すのではないかと考えられている。自験例では、標本の中央部で憩室様に粘膜の筋板を伴う陥入を認めたが、26歳と若く、胃炎もなく *Helicobacter pylori* 陰性であ

り先天性の可能性も残る。

本症の形態に関して Aoki ら²⁾は有茎性の病変をポリープ型、無茎性の病変を粘膜下腫瘍型と分類しているが、病変が小さいものは粘膜下腫瘍様の形態を呈し、サイズが大きくなると腫瘍が自身の重みで胃内腔側に牽引され有茎性の形態を示すと考えられている。いずれの場合も正常粘膜に覆われており通常内視鏡や拡大内視鏡での診断は困難であり、報告例 35 例中内視鏡検査のみで診断が付いた症例はなかった。HIP の診断について特に報告が多いのは EUS 所見であるが、その所見はさまざまである。松岡ら³⁾は粘膜下の大小さまざまな無エコー域の充満する海綿状腫瘍、杉山ら⁴⁾は第 3 層のびまん性高エコー腫瘍、平崎ら⁵⁾は第 2 層から 3 層にかけての低エコー腫瘍、Aoki ら²⁾は第 3 層の heterogeneous tumor と報告しており、EUS のみでは確定診断は困難である。自験例では第 3 層に主座を置く不均一なエコーレベルの腫瘍内部に多発性の無エコー域を確認することができ、これらは病理組織学的検査で確認しえた拡張し増生した腺管構造を見たものと考ええる。また、自験例においては EUS 下穿刺吸引生検を行い、 α -SMA (+), CD34 (-), S100 (-), c-kit (-) という結果から平滑筋腫などの粘膜下腫瘍を最も疑い手術を行ったが、切除標本の詳細な検証により HIP であることが判明した。EUS 下の生検でも HIP の病理学的な診断は困難であり、内視鏡検査所見なども含めた総合的な判断が必要であると思われる。

治療に関しては、基本的には良性疾患であり経過観察が可能であろう。確定診断目的の切除について、近年ほとんどの症例で内視鏡下切除術が行われているが、今回のように平滑筋腫など粘膜下腫瘍を否定しえなかった例⁶⁾、出血を繰り返した例^{7,31)}、部位的に内視鏡下切除が困難な症例、胃癌など他病変が併存した例^{5,33)}では外科手術が行われている。外科手術においては、近年は胃粘膜下腫瘍に対する腹腔鏡下胃局所切除術が普及してきているが、HIP のような胃内突出型においては腹腔鏡のみでは病変部が確認できず、切除ラインの決定に難渋することがある。今回、我々は胃内視鏡を挿入し切離ラインを決定し最小限の胃切除を行うことが可能であった。このような腹腔鏡・内視鏡合同胃局所切除が LECS (laparoscopy endoscopy cooperative surgery) という呼称で徐々に広まっており、今後有効な手段となるであろう。

利益相反：なし

文献

- 1) Allen MS Jr. Hamartomatous inverted polyps of the rectum. *Cancer*. 1966 Feb;19(2):257-65.
- 2) Aoki M, Yoshida M, Saikawa Y, Otani Y, Kubota T, Kumai K, et al. Diagnosis and treatment of a gastric hamartomatous inverted polyp: report of a case. *Surg Today*. 2004;34(6):532-6.
- 3) 松岡 正記, 吉田 行哉, 早川 和雄, 福地 創太郎, 星原 芳雄. 超音波内視鏡にて特徴的所見を呈した胃過誤腫様ポリープの 1 例. *Gastroenterological Endoscopy*. 1995;37(4):767-72.
- 4) 杉山 幸一, 浅木 茂, 大原 秀一, 関根 仁, 豊田 隆謙. 内視鏡的ポリペクトミーを行った若年者の胃粘膜下異所腺の 1 例. *Gastroenterological Endoscopy*. 1992;34(10):2354-60.
- 5) 平崎 照士, 谷水 正人, 那須 淳一郎, 片岡 淳朗, 前原 稔, 鈴木 誠祐. 早期胃癌に合併した粘膜下腫瘍型胃 hamartomatous inverted polyp の 1 例. *日本消化器病学会雑誌*. 2006;103(7):833-8.
- 6) 瀧澤 千晶, 青野 一郎, 森田 重文. 粘膜下腫瘍様所見を呈した胃過誤腫の 1 例. *Progress of Digestive Endoscopy*. 1990;37:240-3.
- 7) 梅岡 達生, 村上 茂樹, 酒井 邦彦, 高間 雄大, 山本 泰久. 出血を繰り返した胃過誤腫の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌*. 2003;64(10):2450-3.
- 8) 山田 直行, 早川 和雄, 福地 創太郎. 胃過誤腫様ポリープの 2 例. *Progress of Digestive Endoscopy*. 1983;23:186-9.
- 9) 田川 桂一郎, 高瀬 雅久, 島田 達朗, 七條 公利, 近 裕, 長間 俊郎, ほか. Somatostatin 陽性細胞を認めた胃過誤腫性ポリープの 1 例. *Progress of Digestive Endoscopy*. 1987;31:289-92.
- 10) 加藤 孝, 佐々木 賢二, 佐藤 忍, 岸井 利昭, 木村 泰三, 平井 淳, ほか. 胃過誤腫様ポリープの 1 例. *胃と腸*. 1989;24:211-6.
- 11) 加藤 彰, 柳井 秀雄, 藤村 寛, 多田 正弘, 吉田 智治, 沖田 極, ほか. 粘膜下腫瘍様の特徴的な内視鏡像を呈した多発性胃過誤腫の 1 例. *Gastroenterological Endoscopy*. 1993;35:1329-33.
- 12) 井上 茂, 長南 明道, 結城 豊彦, 石田 一彦, 藤田 直孝, 野田 裕, ほか. 特徴的な超音波内視鏡像を呈した単発性胃粘膜下異所腺の 1 例. *Gastroenterological Endoscopy*. 1995;37:2216-21.

- 13) 多田 修治, 神尾 多喜浩, 宮島 伸治, 藤本 貴久, 池田 和隆, 瀬上 一誠, ほか. 残胃に発生した hamartomatous inverted polyp の 1 例. 胃と腸. 1996;31:539-46.
- 14) 足立 経一, 末次 浩, 石村 典久, 勝部 知子, 鍛治 武和, 串山 義則, ほか. ポリペクトミーを施行した胃過誤腫様ポリープの 1 例. Gastroenterological Endoscopy. 1997;39:1083-8.
- 15) Itoh K, Tsuchigame T, Matsukawa T, Takahashi M, Honma K, Ishimaru Y. Unusual gastric polyp showing submucosal proliferation of glands: case report and literature review. J Gastroenterol. 1998;33:720-3.
- 16) 加藤 真吾, 寺畑 信太郎, 吉田 由紀子, 渡辺 義則, 永松 秀康, 石井 直樹, ほか. いわゆる胃の“hamartomatous inverted polyp”の 1 例. Progress of Digestive Endoscopy. 1998;51:92-5.
- 17) Kubo S, Akahoshi K, Wakiyama S, Fujimaru T, Kojima H, Nakanishi K, et al. Endosonographic features of solitary gastric hamartomatous polyp. Endoscopy. 2000;32:39.
- 18) 小沢 俊文, 長南 明道, 安藤 正夫, 三島 利之, 熱海 稔, 白根 昭男, ほか. 特異な形態を呈した胃の hamartomatous inverted polyp の 1 例. 胃と腸. 2000;35:965-70.
- 19) 日比野 茂, 高 勝義, 片山 信, 小倉 豊, 安部 哲也. 粘膜下腫瘍像を呈した胃過誤腫性ポリープの 1 例. 日本消化器外科学会雑誌. 2002;35:598-602.
- 20) Ono S, Kamoshida T, Hiroshima Y, Okawara A, Matsuo T, Kakinoki N, et al. A case of early gastric cancer accompanied by a hamartomatous inverted polyp and successfully managed with endoscopic submucosal dissection. Endoscopy. 2007 Feb;39 Suppl 1:E202
- 21) Odashima M, Otaka M, Nanjo H, Jin M, Horikawa Y, Matsuhashi T, et al. Hamartomatous inverted polyp successfully treated by endoscopic submucosal dissection. Intern Med. 2008;47:259-62.
- 22) 友松 雄一郎, 芳野 純治, 乾 和郎, 若林 貴夫, 小林 隆, 渡辺 真也, ほか. 単房性嚢胞から成る胃 hamartomatous inverted polyp の 1 例. 胃と腸. 2010;45:287-93.
- 23) 岡本 勝, 懸樋 英一, 前田 和範, 柳谷 淳志, 田中 究, 清水 辰宣, ほか. 内視鏡的に切除した胃の有茎性 hamartomatous inverted polyp の 1 例. Gastroenterological Endoscopy. 2010;52:2933-7.
- 24) 横沢 秀一, 赤松 泰次, 北原 桂, 白川 晴章, 田中 榮司, 太田 浩良. 内視鏡的に切除した胃 hamartomatous inverted polyp の 1 例. ENDOSCOPIC FORUM for digestive disease. 2010;26:162-7.
- 25) 中尾 雅美, 今井 幸紀, 新井 晋, 庄野 孝, 安藤 さつき, 水野 芳枝, ほか. 有茎性の粘膜下腫瘍様の内視鏡像を呈した胃 hamartomatous inverted polyp の 2 例. Progress of Digestive Endoscopy. 2011;79:66-7.
- 26) 田村 休応, 荒川 廣志, 月永 真一郎, 小田原 俊一, 湯川 豊一, 松平 浩, ほか. 腹腔鏡下切除を施行した胃 inverted hyperplastic polyp の 1 例. Progress of Digestive Endoscopy. 2011;79:70-1.
- 27) 松本 吏弘, 池田 正俊, 東海 浩一, 牛丸 信也, 浅野 岳晴, 高松 徹, ほか. 短期間で形態変化がみられた胃 hamartomatous inverted polyp の 1 例. Progress of Digestive Endoscopy. 2011;79:68-9.
- 28) 工藤 菜穂, 安藤 貴志, 今本 栄子, 岡島 亮, 安川 覚. 内視鏡的切除にて診断しえた胃 hamartomatous inverted polyp の 1 例. 内科. 2012;110:665-8.
- 29) 上尾 哲也, 石田 哲也, 永松 秀康, 成田 竜一, 高橋 健, 小寺 隆元, ほか. EUS 所見より術前診断し, 内視鏡的に切除し得た胃 Hamartomatous inverted polyp の 2 例. Gastroenterological Endoscopy. 2012;54:24-32.
- 30) 倉下 恵里奈, 佐々木 仁, 松本 健史, 増田 芳雄, 林 大久生, 福村 由紀, ほか. 内視鏡的切除を行った胃有茎性 hamartomatous inverted polyp の 3 例. Progress of Digestive Endoscopy. 2013;82:118-9.
- 31) Oberman HA, Lodmell G, Sower D. Diffuse heterotopic malformation of the stomach. N Engl J Med. 1963 Oct;269:909-11.
- 32) 岩永 剛, 小山 博記, 古河 洋, 谷口 春生. 胃における前癌病変としてのびまん性粘膜下異所腺の意義. 日本消化器病学会雑誌. 1976;73(1):31-40.
- 33) Lee SJ, Park JK, Seo HI, Han KH, Kim YD, Jeong WJ, et al. A case of gastric inverted hyperplastic polyp found with gastritis cystica profunda and early gastric cancer. Clin Endosc. 2013 Sep;46(5):568-71.

CASE REPORT

A Gastric Hamartomatous Inverted Polyp Preoperatively Diagnosed as a Mesenchymal Tumor Treated by Laparoscopic Wedge Resection

Taro Isobe¹⁾, Jun Akiba²⁾, Kousuke Hashimoto¹⁾, Junya Kizaki¹⁾,
Satoru Matono¹⁾, Tetsushi Kinugasa¹⁾, Keishiro Aoyagi¹⁾, Hirohisa Yano²⁾ and
Yoshito Akagi¹⁾

¹⁾Department of Surgery, Kurume University School of Medicine

²⁾Department of Pathology, Kurume University School of Medicine

We here report the case of a 26-year-old man who presented with a chief complaint of epigastralgia. Upper gastrointestinal endoscopy revealed a submucosal tumor at the gastric fundus, and the patient was referred to our hospital. Upon endoscopic ultrasonography, a tumor with heterogeneous echogenicity was observed within the third layer of the gastric fundus, and a number of small hypoechoic areas were noted in the inner part. Endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration biopsy revealed that the specimen comprised short spindle-to-oval cells, which showed positivity for smooth muscle actin. Histologically, a non-epithelial tumor with smooth muscle differentiation, such as leiomyoma, was initially suspected. We conducted laparoscopic gastric wedge resection under gastrointestinal endoscopy guidance. The resected specimen was covered with mucosal epithelium without apparent atypia and demonstrated an inverted growth pattern accompanied by muscularis mucosae in the submucosal layer. In addition, the lesion consisted of a dilated gland duct without any atypia and an area of spindle-to-oval-shaped cells. Based on these findings, the tumor was diagnosed as a gastric hamartomatous inverted polyp.

Key Words: hamartomatous inverted polyp, submucosal tumor

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2015;48(3):201-207]

Reprint requests: Taro Isobe Department of Surgery, Kurume University School of Medicine
67 Asahi-machi, Kurume, 830-0011 JAPAN

Accepted: September 17, 2014