症 例

胃の Bizarre Leiomyoblastoma の 1 例

〔附〕 本邦報告例の文献的考察

山口大学第1外科

森 文 樹 江 里 健 輔

光市立病院外科

濃 川 正 信

**BIZARRE LEIOMYOBLASTOMA OF STOMACH: REPORT OF A CASE
AND A REVIEW OF JAPANESE LITERATURE**

Fumiki MORI*, Kensuke ESATO* and Masanobu KOIKAWA**

* First Department of Surgery, Yamaguchi University School of Medicine

** Department of Surgery, Hikari City Hospital

胃の Bizarre Leiomyoblastoma は稀な平滑筋由来の腫瘍で、その特徴的な組織像と比較的良性の臨床経過をとることが知られている。われわれは46歳、男性で有茎性に胃幽門前庭部大弯より胃外性に発育した本腫瘍の1例を経験したので報告するとともに、文献的に渉猟しえた本邦報告28例を考察した。

索引用語：胃の Bizarri Leiomyoblastoma. 胃外性発育，筋原性腫瘍

はじめに

胃の非上皮性腫瘍の中で、Stout (1962)¹⁾ が従来、平滑筋腫、平滑筋肉腫、血管外皮腫、神経原腫瘍などと診断されていたものから、臨床的に比較的良性の経過をとり、組織学的に平滑筋由来の特異な腫瘍細胞の形態を示すものに Bizarre Leiomyoblastoma と名付け、69例を報告して以来、欧米では200例余りの報告がある。

しかし本邦では久保 (1965)²⁾ の報告以来、われわれの調査し得た限りでは28例に過ぎない。

われわれは胃潰瘍に対する胃切除の際、偶然に幽門部大弯より胃外性に発育した振子様腫瘍を認め、術後の病理組織学的検討にて Bizarre Leiomyoblastoma と診断された1例を経験した。胃における本腫瘍は通常、粘膜下腫瘍として術前診断されることが多いが、自験例のごとく胃粘膜面に病変なく、胃外性発育を示した例は比較的稀れで本邦報告28例とともに若干の文献的考察を加え、報告する。

症 例

患者：46歳，男性，自営業。

主訴：心窩部痛。

既往歴：2年前，胃潰瘍にて内科的治療を受けた。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2年前より心窩部痛をきたし，胃潰瘍の診断にて1カ月半の入院治療で軽快したことがあった。今回，入院1週間前より心窩部痛が著明となり，胃透視にて胃潰瘍の再発と診断され，当科へ紹介された。

現症：体格中等度，栄養状態良好。顔面，眼球および眼瞼結膜に貧血，黄疸なく，いずれの部位にもリンパ節を触れなかった。心窩部に圧痛を認めるも，腫瘍は触知せず，肝脾腫も認めなかった。

臨床検査所見：表1に示すとおりである。

胃透視所見：立位充盈像にて胃角上部小弯側に深い Nische を認め，腹臥位充盈像では同様の Nische と幽門部大弯側に陰影欠損様，あるいは胃外からの圧迫様所見がみられた（図1）。仰臥位二重造影像では幽門部狭小化が認められたが粘膜像に異常を認めなかった。

胃内視鏡所見：胃角上部に深い良性潰瘍を認めるも，幽門部から前庭部には何ら病変を認めなかった。

Table 1. Laboratory data

1) Blood examination		CCFT	0
RBC	$423 \times 10^4/\text{mm}^3$	Icteric Index	5
Hb	13.1 g/dl	GOT	24 u
Ht	40%	GPT	18 u
WBC	6800	Alk. phosphatase	15 u
cholesterol	169 mg/dl	2) Serum electrolyte (mEq/L)	
BUN	11 mg/dl	Na	136
Blood Sugar	87 mg/dl	Cl	102
Amylase	108 mg/dl	K	4.3
Serum Protein	7.5 g/dl	Ca	5.2
Albumin	4.2 g/dl	3) Urinalysis : normal	
A/G ratio	1.27%	4) Occlut blood of fecus : positive	

図 1 胃透視所見

- A (立位充盈像) : 胃角上部小弯側に大きな Nische (矢印) を認める。
 B (腹臥位充盈像) : 胃角上部小弯側の Nische (大矢印) と幽門部大弯側に陰影欠損 (小矢印) を認める。

術中所見 : 胃漿膜に被覆された暗赤色、手拳大の弾性軟の腫瘍が胃幽門前庭部大弯側前壁より有茎性に胃外性発育を示していた (図 2)。肝に異常なく、所属リンパ節腫大はなく、良性腫瘍として、胃潰瘍を含め胃亜全摘術を施行した。

摘出標本 : 腫瘍の大きさは $9 \times 8 \times 4 \text{ cm}$ で、表面は平滑で血管に富み、一部は多房性を呈していた。腫瘍の断面は大部分充実性であったが、一部は大小の囊胞を形成し、凝血塊を容れていた。

腫瘍は胃漿膜におおわれ、筋層との境界は不明瞭であった。胃角上部の潰瘍は腫瘍と無関係で、小網へ穿通していた (図 3)。

病理組織学的所見 : 膠原線維にとりかこまれた類円形

図 2 術中所見

胃漿膜に被覆された有茎性の腫瘍 (弯曲矢印) を認める。St. : 胃

図3 剔出標本肉眼所見

腫瘍の表面は平滑で、一部に大小の囊胞形成（直矢印）を認める。胃角上部小弯側に辺縁が整なる潰瘍（弯曲矢印）を認める。T：腫瘍，St.：胃

ないしは多角形の腫瘍細胞が多数認められ、その細胞質は好酸性または空胞状を呈し、さらに核周囲に空胞状の透明帯を認めた。これはPAS染色，SudanⅢ染色，Alcian blue染色にも陰性で、以上のことから本腫瘍はBizarre Leiomyoblastomaと診断された（図4）。

術後、抗癌剤投与も行わず、3週間後に軽快退院し、術後1年現在、患者は健康に就業している。

考 察

Stoutの提唱した胃のBizarre Leiomyoblastomaはその特異な組織像と比較的良好な臨床経過からLeimyoblastomaと区別される平滑筋由来の腫瘍である。1973

年、Abramson³⁾らは欧米で報告された190例を集計した。それによれば、年齢は12歳から91歳、平均56.6歳で40歳以上が84.6%を占め、中高年層に多発し、男女比は9：7であった。臨床症状としては消化管出血が最も多く、次いで腹痛、腹部腫瘤などであるが、全く無症状であったものが27.3%にも認められる。胃における好発部位は幽門部68%，胃体部21.3%，噴門部5.3%の順で、多発性に認められたものが6.8%である。腫瘍の肉眼的形態は胃内腔への発育が主で、多くは粘膜下腫瘍の形を

Table 2. Summary of 190 Cases of Bizarre Leiomyoblastoma of the Stomach (Abramson, 1973)

Age	12~91yrs (56.6)
Sex	M : F = 9 : 7
Symptom and Sign	
Gastrointestinal bleeding	43.8 %
Abdominal pain	25.6 %
Abdominal Mass	24.0 %
Site	
Antrum	68.0 %
Body	21.3 %
Cardia	5.3 %
Multiple	6.8 %
Shape	
Submucosal tumor with ulceration	common
Exogastric growing	2.0 %
Treatment	
Gastrectomy	65.7 %
Local resection	29.7 %
Enucleation	1.5 %

図4 剔出標本組織学的所見（A：弱拡大，B：強拡大）

膠原線維にとりかこまれた類円形ないしは多角形の腫瘍細胞を多数認め、核周囲に空胞状の透明帯を認めた（弯曲矢印）。

とり、隆起病変の中心部にはびらんや潰瘍を伴うことが普通である。われわれの症例のごとく胃外性発育を呈するものは稀で、2%の頻度である(表2)。

本邦では1965年久保らの3例の報告以来、われわれが文献的に検索しえた限り、28例の報告がある^{2) 4) ~ 23)}。

この28例の年齢分布は22歳から77歳で平均年齢50.8歳であり、男女比は3:4であった。臨床症状は消化管出血が29.6%と最も多く、その他心窩部痛、腹部腫瘍などであり、無症状で、偶然に上部消化管の透視等の検査にて発見されたものも少なくない。術前に確定診断が可能であった症例はほとんどなく、これは粘膜下腫瘍のため生検による組織診断が技術的に困難なためであろう。胃における発生部位は胃体部46.4%、幽門部32.1%、胃角部10.7%、噴門部7.1%であった。欧米では圧倒的に幽門部に多いが、本邦では胃体部に多かった。大きさは大豆大から小児頭大までいろいろあり、肉眼的形態は大部分が粘膜下腫瘍として隆起病変を呈し、Delleを有することが多い。しかし中には胃粘膜面や胃漿膜面の両方へ発育隆起し、hour glass 様の腫瘍を呈するもの⁴⁾、またわれわれの症例のごとく有茎性に胃外性発育を呈する例もみられる^{8) 11) 20)}。Abramsonによると胃外性発育を呈したものは190例中3例にすぎず、Wolfら²⁴⁾は巨大な有茎の胃外性発育例を報告している。これらの発育形式の相違は腫瘍が胃平滑筋層の内側か外側に由来するかによるものであろう。

肉眼所見は血管に富み、灰白色から灰褐色の充実性のものが多く、さらに大きなものではしばしば中心部に壊死や出血を伴い、あるいは多房性を示し、中に凝血塊を容れるものが多いという¹²⁾。

組織像は Stout の述べたごとく円形ないし多角形的好酸性胞体を有す腫瘍細胞が主に増殖し、かつ核周囲に脂肪、糖原、粘液が証明されない透明帯を伴うことが特徴とされている。しかしながらこの透明帯はホルマリン固定による artifact で、グルタルアルデヒド固定では認められないという^{25) 26)}。他方、Kayら²⁷⁾は電顕的に腫瘍細胞内に粗面小胞体の拡張や大空胞が存在することが本腫瘍の特徴的電顕所見の一つであるとしている。今村ら¹⁵⁾も同様の所見を認め、これらの空胞は腫瘍細胞内の蛋白合成が盛んであるためか、あるいはこの空胞が神経分泌顆粒とよく類似しており、迷走神経由来の Paraganglioma ではないかとの説を唱えている。以上のごとく本腫瘍の由来には不明な点もあるが、Leiomyoma への移行像^{2) 8) 12) 14)}、電顕的に筋原線維の存在やその他の

平滑筋由来を示唆する所見が多いことより^{15) 21)}現在では、筋原性腫瘍であるとされている。

Leiomyoblastoma は胃以外の他臓器からも発生し、Lavinら²⁸⁾は子宮、小腸、大腸、食道、腔、後腹膜腔などの由来例を報告しているが、大半は胃から発生している。

本腫瘍は大部分が良性の経過をとるが、Malignant potential と考えねばならない^{1) 28)}。Abramsonによれば190例中12%に転移を認めている。本邦例では一部に浸潤像や脈管侵襲が組織学的等認められた例もあり^{4) 5) 14)}鈴木ら¹⁷⁾は肝転移例を報告している。悪性度の判定として Stout は接眼レンズ10倍、対物レンズ20倍の高倍率視野で無作為の50視野中の mitosis の数を算定し、これが4以下の場合を良性として、一応の判定基準を求めている。しかし悪性と診断されたものに mitosis の少ない例があったり、mitosis の多い例でも良性の経過をとる例もあり、mitosis の数による予後の判断は困難であるという報告もある³⁾。

手術術式は Abramson の集計によれば胃切除65.7%、局所切除29.7%、核出術1.5%であり、本邦例は全例に胃切除が施行され、倉内ら¹⁸⁾は所属リンパ節廓清を加えている。Lavinによれば、胃切除後の23例中8例に再発をきたしたとの報告もあり、本腫瘍の悪性の判断が困難であることから、単純な胃切除は必ずしも妥当とは云えず、本腫瘍手術例の遠隔成績により決定されるべきであらう。

結 語

胃の Leiomyoblastoma の1例を経験したので報告し、併せて本邦報告例の検討を加えた。本症の術後臨床経過は比較的良好であるが、稀に、転移または再発症例もあることより、悪性疾患として手術すべきことを強調したい。

(終りに、御教示、御協力をいただいた山口大学第一病理学教室の石原得博講師、長沢孝明先生に深謝いたします。本論文の一部は第53回中国四国外科学会において報告した。)

文 献

- 1) Stout, A.P.: Bizarre smooth muscle tumors of the stomach. *Cancer*, **15**: 400—409, 1962.
- 2) 久保利夫, 他: 胃の変型平滑筋芽細胞腫 (Bizarre leiomyoblastoma). 癌の臨床, **11**: 643—646, 1965.
- 3) Abramson, D.J.: Leiomyoblastomas of the stomach. *Surg. Gynecol. Obstet.*, **136**: 118—

- 125, 1973.
- 4) 浜崎美景, 藤田 甫: 胃の Bizarre leiomyoblastoma の1例. 臨床病理, **15**: 562, 1967.
 - 5) 万波徹也, 他: 胃の変型平滑筋芽細胞腫の1例. 細胞核病理学雑誌, **11**: 133—136, 1967.
 - 6) 坂本武司, 他: 胃 Leiomyoblastoma の1例. 胃と腸, **4**: 1243—1247, 1969.
 - 7) 木原 〇, 他: 陥凹性変化にみられた Leiomyoblastoma の1例について. Gastroenterological Endoscopy, **10**: 135, 1968.
 - 8) 馬場正三, 他: 胃の変型平滑筋芽細胞腫の1例. 臨床外科, **24**: 952—955, 1969.
 - 9) 鈴木博昭, 他: 胃の変型平滑筋芽細胞腫 (Bizarre Leiomyoblastoma) の1例. 日消病会誌, **68**: 1152, 1971.
 - 10) 菅井健二, 他: 胃平滑筋芽細胞腫の例 (英文). 防衛衛生, **19**: 59—63, 1972.
 - 11) 中山 祐, 他: 胃の変型平滑筋芽細胞腫の2例. 日臨外会誌, **33**: 71, 1972.
 - 12) 田中貞夫, 他: 胃の所謂変型平滑筋芽細胞腫 (Bizarre leiomyoblastoma) の病理組織学的研究. 鹿児島大学医誌, **25**: 1—16, 1973.
 - 13) 伊藤〇彦, 国井康男: 胃 Leiomyoblastoma の1例. 日癌治会誌, **8**: 330, 1973.
 - 14) 内田雄三, 他: 胃の変型平滑筋芽細胞腫 (Bizarre leiomyoblastoma) の検討. 癌の臨床, **20**: 334—337, 1974.
 - 15) 今村正克, 他: 胃の bizarre leiomyoma (leiomyoblastoma) の電顕的観察. 癌の臨床, **20**: 472—476, 1974.
 - 16) 片山憲〇, 他: 大量出血を来した胃の Leiomyoblastoma の1例. 日消病会誌, **71**: 513, 1974.
 - 17) 鈴木 彰, 他: 肝転移を伴った胃 malignant leiomyoblastoma の1治験例. 外科治療, **17**: 720—724, 1975.
 - 18) 倉内嘉人, 他: 術前に確定診断された胃の bizarre leiomyoblastoma の1例. 胃と腸, **10**: 437—440, 1975.
 - 19) 遠藤 修, 他: 胃の平滑筋芽細胞腫 Bizarre leiomyoblastoma の1例. 胃と腸, **10**: 937—941, 1975.
 - 20) 太田 保, 他: 巨大血腫および腹腔内出血を伴う胃平滑筋芽細胞腫の1例. 外科, **39**: 624—626, 1977.
 - 21) 小坂井守, 他: 胃の Bizarre Leiomyoblastoma の1例. 胃と腸, **12**: 1339—1344, 1977.
 - 22) 柏崎 修, 他: 胃の平滑筋芽細胞腫 (Leiomyoblastoma) の3例. 胃と腸, **12**: 1527—1531, 1977.
 - 23) 植松 清, 他: 胃 Leiomyoblastoma の1例. 日臨外会誌, **39**: 1050, 1978.
 - 24) Wolf, J.S.: Massive leiomyoblastoma of the stomach. Arch. Surg., **96**: 284—288, 1968.
 - 25) Cornog, J.L.: The ultrastructure of leiomyoblastoma. Arch. Path., **87**: 404—410, 1969.
 - 26) Salazar, H. and Totten, R.S.: Leiomyoblastoma of the stomach. An ultrastructural study. Cancer, **25**: 176—185, 1970.
 - 27) Kay, S. and Still, W.J.S.: A comparative electron microscopic study of leiomyosarcoma and bizarre leiomyoblastoma of the stomach. Am. J. Clin. Path., **52**: 403—413, 1969.
 - 28) Lavin, P., et al.: Gastric & extragastric leiomyoblastomas. Clinicopathologic study of 44 cases. Cancer, **29**: 305—311, 1972.