症 例

頸部に発生した平滑筋腫と横紋筋腫

川崎医科大学内分泌外科教室（主任：妹尾亘明教授）

佐藤 尚 司 原 田 種 一 原 太 久 茂

谷 口 達 吉 妹 尾 亘 明

同 人体病理学教室

広 川 満 良 真 鍋 俊 明

LEIOMYOMA AND RHABDOMYOMA OF THE NECK, REPORT OF THE CASES

Hisashi SATO, Tanekazu HARADA, Takumo HARA,

Tatsuyoshi TANIGUCHI and Tsuneaki SENO

Department of Endocrine Surgery, Kawasaki Medical School

(Director: Prof. Tsuneaki SENO)

Mitsuyoshi HIROKAWA and Toshiaki MANABE

Department of Pathology II, Kawasaki Medical School

頸部腫瘍は、外科医が日常遭遇する最もポピュラーな疾患の一つであるが、その診断には頭を悩ますことが多い。頸部には多くの疾患によって腫瘍を来す。そのうち約半数が甲状腺由来であるといわれている。そこで甲状腺由来の頸部腫瘍と他の疾患に由来するものとの鑑別が必要となってくる。

近年アイソトープ検査、超音波検査、CT 検査などの画像診断法が進歩し、頸部腫瘍の診断が比較的容易になってきた。しかし術前に確実な診断を行なうことはたいへん難しく、手術にて診断を得ることも少なくない。

我々は頸部腫瘍を生じ甲状腺腫が疑われ、手術にて頸部食道平滑筋腫と輪状甲状筋横紋筋腫と診断し得た 2 症例を経験したので報告する。

症例 1 は 53 歳の女性で、前頸部腫瘍を主訴に来院した。術前検査にて確定診断できず、手術を施行したところ食道壁由来の筋腫であり、組織学的には leiomyoma であった。

症例 2 は 31 歳の男性で、前頸部腫瘍を主訴に来院した。術前に結節性甲状腺腫と診断し、手術にて腫瘍を摘出し、組織学的に rhabdomyoma であった。

頸部腫瘍を診断する場合、ポピュラーな疾患について精通することはもちろんであるが我々の症例のような稀な疾患の存在を認識することが診断に役立つのではないかと考える。

索引用語：頸部腫瘍、平滑筋腫、横紋筋腫

緒 言

頸部腫瘍は、外科医が日常遭遇する最もポピュラーな疾患の一つであるが、その診断には頭を悩ますことが多い。

頸部には腫瘍発生源となりえる組織、器官として皮膚、脂肪、筋肉、筋膜、骨、軟骨、血管、神経、リンパ管、リンパ節、唾液腺、甲状舌管遺残、甲状腺、副

甲状腺、胸腺、頸動脈体、交感神経節、咽喉頭、頸部食道、鰓原組織遺残などがある。しかしそのうち甲状腺由来のものが最も多く約半数を占めるといわれている。

頸部腫瘍の診断には視診、触診が重要であることはもちろんであるが、近年アイソトープ検査、超音波検査、CT 検査などの画像診断法が進歩し、診断が容易と

なってきた。しかしこれらの補助診断法を用いても診断が難しい場合があり、生検や手術によって始めて確診されることも少なくない。

我々は頸部腫瘍を主訴に来院し、甲状腺腫が疑われ手術を施行し、頸部食道平滑筋腫と輪状甲状筋横紋筋腫であった2症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

症例1：53歳，女性

主訴：前頸部腫瘍

既往歴，家族歴：特記すべきことはない

現病歴：昭和50年頃前頸部腫瘍に気付くが特に自覚症状がないので放置していた。昭和52年には軽度の呼吸困難及び嚥下障害が出現したため、他院にて精査を受けたが特に異常は指摘されなかった。昭和55年5月喘鳴，呼吸困難，嚥下障害が増強したため精査目的で当院に入院した。

入院時所見：身長148.5cm，体重55kg，血圧148/90 mmHg，脈拍88/分整であった。触診にて甲状腺部に一致したび慢性の腫大が認められ，弾性硬，表面平滑，圧痛はなかった。また頸部リンパ節腫大も認められなかった。聴診上全肺野に吸気時呼吸音の増強を認めたが，その他理学的所見には異常を認めなかった。

検査成績：赤血球数 $477 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，血色素量14.5g/dl，ヘマトクリット40.6%，白血球数5,000/ μl ，血清蛋白7.9g/dlと異常なく，血清電解質，肝，腎機能及び心電図も正常であった。

甲状腺機能検査では，Triosorb test 22.6%， T_4 9.5 $\mu\text{g/dl}$ ， T_3 142ng/dl，TSH 2.5 $\mu\text{U/ml}$ 以下，サイロイドテスト1：100以下，マイクロゾームテスト1：100以下と正常であった。

胸部X線写真では両肺野，心陰影には異常は認められなかったが，第5，6頸椎の高さにて正面像で気管陰影と重なる異常ガス像を認めた。頸部X線側面像では第5，6頸椎の高さにて前方に圧排された気管陰影と，第5頸椎前面に異常ガス像が認められた（写真1）。

食道造影では，正面像に第5，6頸椎の高さにて右方に圧排された食道が認められた。側面像では第5，6頸椎の高さで前方に圧排され，口腔側の拡張した食道が認められた。圧排部食道壁は比較的平滑で，食道壁及び食道外に発生した良性疾患による圧排が考えられた（写真2）。

頸部CT写真では，頸椎前面に位置し下縁は縦隔まで達している腫瘍陰影が見られた。腫瘍の内部構造は

写真1 症例1. 頸部X線写真：気管陰影と重なる異常ガス像

写真2 症例1. 食道造影：右方に圧排され口腔側が拡張した食道が見られる。

比較的均一で周囲との境界も明瞭であった。気管及び甲状腺は前方に圧排されており，特に甲状腺左葉は圧

写真5 症例2. ^{131}I 甲状腺シンチグラム：左葉に欠損像を認める。

排され菲薄化していた。食道は腫瘤により右外側に圧排偏位しており、気管と食道の解離が認められた（写真3）。

以上の検査より、1) 慢性甲状腺炎に甲状腺未分化癌または悪性リンパ腫が合併した状態 2) 慢性甲状腺炎に食道または縦隔に発生した腫瘍が合併した状態 3) 腺腫様甲状腺腫が甲状腺裏面より発生した状態の可能性が考えられたが臨床経過より1)は考えにくく、生検を行なった。

生検所見：昭和55年6月30日、局麻下に切除生検を施行した。約3cmのカラー切開を加え甲状腺左葉を露出した。甲状腺左葉は、背側より腫瘤に圧排されやや薄く軽度萎縮していた。腫瘤と甲状腺とは癒着もなく、甲状腺左葉を反転し腫瘤を露出した。腫瘤は乳白色で表面平滑、弾性硬、一部を楔状に切除生検を行なった。切除標本の病理学的検索にて、非上皮性腫瘍が考えられたが、良・悪性の鑑別には至らなかった。

頸部血管造影を根治術の適応決定及び腫瘍の性状を調べるために行なった。両側頸動脈は外側に圧排されていたが、血管新生、腫瘍血管、腫瘍濃染などの悪性所見は見られなかった。したがって食道、気管後面、もしくは他の周囲臓器より発生した非上皮性腫瘍と診断し、腫瘤摘出術を行うことにした。

手術所見：昭和55年7月14日、全身麻酔下に約12cmのカラー切開を加え、腫瘤を露出した。腫瘤は周囲組

織より指頭にて容易に剝離し得た。腫瘤を創外に脱転すると食道が露出された。腫瘤の一部は食道と強い癒着をしめし、食道由来の腫瘍であることが判明した。食道との癒着部を剝離し腫瘤を核出した。剝離にて食道壁の一部を創傷したが縫合閉鎖した。手術操作による両側の反回神経損傷を考慮して、気管切開術を行ない手術を終った。

病理所見：肉眼所見では9×6×4cm大で163g、洋梨状を呈し、薄い結合織の被膜で被われ、弾性硬であった。断面は灰白色、淡黄色を呈し、束状構造が見られた。組織所見では、結合織で囲まれた大小の束状に集合する紡錘細胞の増殖が見られた。出血や壊死は見られず、細胞にも分裂像を認めず、leiomyomaと診断された。

術後経過：術後経過良好にて、術後26日目に退院した。その後現在まで約4年間、再発の徴候は認めていない。

症例2：31歳、男性

主訴：前頸部腫瘤

既往歴：9歳時に、ギラン・バレー症候群

家族歴：特記すべきことはない

現病歴：昭和58年1月頃医師である父に前頸部腫瘤を指摘されるが、自覚症状がなかったため放置していたが、5月には前頸部腫瘤の増大が認められたため某院にて精査を受け、6月当科を受診した。

入院時所見：身長170cm、体重65kg、血圧134/70mmHg、脈拍68/分整、前頸部に3×3.5cm大の腫瘤を解知した。腫瘤は境界明瞭で弾性硬、表面平滑、圧痛はなかった。その他理学的所見には異常を認めなかった。

検査成績：赤血球数 $459 \times 10^4/\mu\text{l}$ 、血色素量14.2g/dl、ヘマトクリット41.6%、白血球数5,800/ μl 、血清蛋白7.2g/dlと異常なく、血清電解質、肝腎機能および心電図も正常であった。

甲状腺機能検査では、 T_3 1.5ng/ml、 T_4 8.7 $\mu\text{g/dl}$ 、TSH 3.9 $\mu\text{U/ml}$ 、サイロイドテスト1：100以下、マイクロゾームテスト1：100以下と正常であった。

胸部X線写真では、左右の肺野及び心陰影に異常は見られなかったが、第7頸椎から第2胸椎のレベルで、気管が右方へ圧排されている所見が認められた。頸部X線写真でも同様の所見を認めたが、明らかな腫瘤陰影や石灰化像は見られなかった（写真4）。

^{131}I 甲状腺シンチグラムでは、左葉に欠損像を認めた（写真5）。

写真4 症例2. 頸部 X 線写真：気管が右方へ圧排されている。

写真5 症例2. ^{131}I 甲状腺シンチグラム：左葉に欠損像を認める。

頸部 CT 写真では、甲状腺左葉裏面に接した $\phi 35$ mm の腫瘤陰影が見られた。腫瘤の内部構造は比較的均一で周囲との境界も明瞭であった。気管は腫瘤によ

写真6 症例2. 頸部 CT：甲状腺左葉裏面に接して、内部構造の比較的均一な境界明瞭な腫瘤陰影を認める。

り左方に圧排偏位しており、食道は腫瘤により圧迫され腫瘤に接した部位では同定不能であった（写真6）。

以上の検査より結節性甲状腺腫と臨床診断を行ない、腫瘤摘出術を行なうことにした。

手術所見：昭和58年6月27日、全身麻酔下に約8cmのカラー切開を加え、甲状腺左葉を露出した。甲状腺左葉は背面よりくるみ大の腫瘤により圧排され軽度の萎縮を認めた。腫瘤は輪状甲状筋と甲状腺左葉上極に強く癒着しており剥離不能で、両者を含めて腫瘤を摘出した。術中迅速病理診断はbenign spindle cell tumorであった。後出血に対しドレーンを留置し手術を終った。

病理所見：肉眼所見では4.7×3.9cmで弾性硬、甲状腺と輪状甲状筋に癒着している以外は被膜によって囲まれていた。断面は黄白色で、錯走する束状膜様を呈し、出血や壊死を示す所は認められなかった。組織所見では大半は線維性被膜で囲まれていたが、所々で境界不明瞭となり、正常横紋筋の混在した所や、甲状腺組織との不整な境界を示す所が認められた。しかし全体的には腫瘍は膨脹性に発育し、明らかに浸潤性に発育を示す所はみられなかった。腫瘍細胞は大型、円形、多稜形、長紡錘形のもものが混在し、大小の束を形成し種々の方向に錯走していた。核は楕円形から紡錘形で、やや偏在傾向を示していたが、1個の明らかな核小体を有し、核分裂像を示したものは見られなかった。腫瘍細胞の胞体は好酸性で、比較的容易に横紋を確認できた。以上よりrhabdomyomaと診断した。

術後経過：術後出血のため術部に血腫をつくった

が、術後 6 日目に皮膚に 1cm の小切開を加え凝血塊を排除した。その後経過良好にて 7 月 7 日、術後 10 日目に退院した。その後、約 1 年間再発の徴候は認めていない。

考 察

頸部腫瘍を主訴に来院する患者は多い。医師が頸部腫瘍を診察し診断を行う場合、まず頸部の解剖を熟知し、その上でどこにどのような腫瘍が発生するかということを知っておく必要がある。

Marshall & Urams¹⁾は発生組織別に、Skandalakis²⁾は原因別に、Sedgwick³⁾は発生部位別に、おのおの頸部腫瘍を分類している。

現在、補助診断法として多用されている超音波検査、アイソトープ検査、CT 検査などの画像診断法は、診断確定のために有用である。

症例 1 の平滑筋腫であるが、食道平滑筋腫は比較的古まれな疾患とされており、Harrington & Moersch⁴⁾によると Mayo clinic で行なわれた 7,459 例の剖検中 32 例 (0.43%) と報告されている。手術例は、Storey & Adams⁵⁾の記載によれば、1932 年 Sauerbruch が食道切断術、食道胃吻合術を行なったのが最初であるとされている。1933 年大沢⁶⁾は、筋腫核出術に成功している。

平滑筋腫はあらゆる消化管に発生し、Oberhelman⁷⁾は、胃 63.8%、小腸 20.4%、大腸 9.9%、食道 6%、と報告しており、食道は胃の 10 分の 1 以下の発生率であることを示している。

食道平滑筋腫は、一般に 30~40 歳台に発生のピークを有し、食道癌に比し若く、若干男性に発生頻度が高い。

食道における部位別発生頻度については、Lewis & Maxfield⁸⁾が 155 例を集計し、頸部 1.7%、胸部上部 7.6%、胸部中部 29.4%、胸部下部 38.7%、腹部 7.6%、と報告している。本邦では小林⁹⁾が 264 例を集計し、頸部 0.4%、胸部上部 13.6%、胸部中部 25.8%、胸部下部 43.6%、腹部 3.8% と報告している。いずれも頸部及び胸部上部食道における発生率は低く、食道の口腔側 3 分の 1 の筋層が主として横紋筋により構成されているため、当然の結果と考えられる。

発育形式としては、管内性、壁内性壁外性があり、一般には壁内性のものがほとんどで、管内性や壁外性のものは稀とされている。管内性及び壁内性のもので内腔に突出するようなものは、比較的小さくても狭窄などの症状を呈し臨床的に発見されやすいが、壁外性の場合には無症状のうちに大きくなり、本例のごとく

頸部腫瘍を呈してはじめて発見されることもある。

食道平滑筋腫の治療法は、Seremetis¹⁰⁾によると内視鏡的切除術 4%、開胸術による核出術 80%、開腹術による核出術 6%、食道切除術 10% と開胸術による核出術が最も行なわれていることを示している。

頸部食道に発生した平滑筋腫は、本邦では 1955 年伊藤¹¹⁾による頸部食道筋腫手術成功例の報告を見るだけである。伊藤らの報告には筋腫としてしか記載されておらず、術中に悪性と診断し、喉頭及び気管を含む食道切除術を行なっている。

我々の症例は、筋腫核出術を行ない、病理学的に平滑筋腫と確診し得た頸部食道に発生した平滑筋腫の本邦における第 1 例目であると思われる。

症例 2 の横紋筋腫については、現在心臓外横紋筋腫は、adult rhabdomyoma, fetal rhabdomyoma, genital rhabdomyoma の 3 型に分類されている¹²⁾。

adult rhabdomyoma は、最も多いタイプで成人男性の頭頸部に単発するとされている。とくに第 3、第 4 鰓弓の鰓筋に関連する咽頭、喉頭、口腔、舌に好発する。一般に発育は緩徐で無痛性のことが多い。

fetal rhabdomyoma は、主として 3 歳以下の男児にみられ、頭頸部の皮下組織とくに耳後部に好発する。

genital rhabdomyoma は、中年女性の陰や外陰にポリープ状またはカリフラワー状の腫瘍を形成する。

横紋筋腫は、平滑筋腫に比し稀な疾患であり、本質は未だ明らかでない。成熟した骨格筋から発生するとは考えられず、胚細胞残遺物から発生すると一般的に考えられている。しかし横紋筋腫自体、真の腫瘍であるのか過誤腫的なものであるのか明らかな定説は今のところない¹³⁾。

結 語

頸部腫瘍をきたして発症した頸部食道平滑筋腫と、輪状甲状筋横紋筋腫を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Marshall, S.F. and Uram, H.: Tumors of the neck and parotid areas: Report of more than 1000 cases. Postgrad. Med., 22: 330—342, 1957.
- 2) Skandalakis, J.E., Gray, S.W., Takakis, N.C., et al.: Tumors of the neck. Surgery, 48: 375—384, 1960.
- 3) Sedgwick, C.E.: Tumors of the neck. Surg. Clin. North. Am., 45: 553—566, 1965.
- 4) Harrington, S.W. and Moersch, H.J.: Surgical

- treatment and clinical manifestations of benign tumors of the esophagus with report of seven cases. *J. Thorac. Surg.*, 13: 394—414, 1944.
- 5) Storey, C.F. and Adams, W.C. Jr.: Leiomyoma of the Esophagus. *Amer. J. Surg.*, 91: 3—23, 1956.
- 6) 大沢 達: 食道外科, 日外会誌, 34: 1319—1590, 1933.
- 7) Oberhelmar, H.A., Condon, J.B. and Guzauskas, A.C.: Leiomyoma of the gastrointestinal tract. *Surg. Clin. North. Am.*, 32: 111—122, 1952.
- 8) Lewis, B. and Maxfield, R.G.: Leiomyoma of the Esophagus: Case report and review of the literature. *Surg. Gyencol. Obstet.*, 99: 105—128, 1954.
- 9) 小林康人, 勝見正治, 河野暢之他: 食道平滑筋腫の 3 例, 本邦264例の分析, 日臨外会誌, 42(2): 169—176, 1981.
- 10) Seremetis, M.G., Lyons, W.S., deGuzman, V.C., et al.: Leiomyoma of the esophagus: Analysis of 838 cases. *Cancer*, 38: 2166—2177, 1976.
- 11) 伊藤慧脩, 加藤茂雄: 稀有なる頸部食道筋腫手術成功例, 日耳鼻会報, 58: 1210, 1955.
- 12) Enzinger, F.M. and Weiss, S.W.: *Soft tissue tumor*, Mosby, St. Louis, 325—337, 1983.
- 13) 広川満良, 真鍋俊明, 原田種一: 輪状甲状筋に発生した横紋筋腫の一例, 臨床と病理, 10号, 印刷中.
-