症 例

腹膜再発巣切除後長期生存している胃平滑筋芽細胞腫の1例

愛知県がんセンター消化器外科部, 同 臨床検査部*

高橋孝夫 加藤知行 森本剛史

山村義孝 紀藤毅 中村栄男*

症例は初診時45歳の男性。腹部腫瘍の診断で開腹術を施行。胃前庭部大彎側に有茎性胃外発育型腫瘍を認め、胃局所切除にて腫瘍を摘出した。摘出標本は大きさ34×30×24 cm, 体重5,500g, 病理組織学的所見は胃平滑筋芽細胞腫であった。初回手術から6年後に直腸指診, 骨盤CTで骨盤内腫瘍を認めた。6カ月後のCTにて腫瘍の増大を認め、ダグラス窩再発を疑って開腹した。ダグラス窩, そして大網に2カ所腫瘍を認め、それぞれを摘出した。病理組織学的に胃平滑筋芽細胞腫の腹膜再発と診断された。再手術後現在まで12年間再発の徴候は認めていない。

胃平滑筋芽細胞腫は比較的にまれな悪性度の低い疾患とされるが, 原発巣切除6年後に腹膜再発をきたし, 再発巣切除後長期間無再発生存中の1例を経験した。slow growingな腹膜再発は再切除できる症例があり, 再発巣切除により長期生存も期待されると考えられた。

索引用語: 胃平滑筋芽細胞腫, 腹膜再発

はじめに

胃平滑筋芽細胞腫は比較的にまれな悪性度の低い腫瘍である。1960年にMartin¹⁾がmyoid tumorとして報告したのが最初であり, その後1962年にStout²⁾は胃筋原性腫瘍のうち核周囲に明るい空胞化した透明帯を伴う特徴ある細胞形態を有するものをbizarre leiomyoblastomaと命名した。本邦では吉田ら³⁾が1964年に報告して以来, 現在まで338例が報告されているが, そのうち腹膜再発をきたした例は13例にすぎない。今回, 原発巣切除6年後に腹膜再発をきたし, 再発巣切除後長期間無再発生存中の1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 初診時45歳, 男性。

主訴: 腹部膨満感。

既往歴: 35歳時に尿路結石症, 44歳時に左鼠径ヘルニア根治術施行。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1977年4月に腹部膨満感が出現。徐々に増強, さらに心窩部痛が出現したため, 1977年11月1日

当院受診した。

入院時現症: 身長153cm, 体重54kg。腹部は膨隆し, 腹壁の皮下静脈の怒張を認めた。

入院時血液検査所見: 白血球が $12,700/\text{mm}^3$ と高値以外異常所見を認めず。

画像検査所見: 上部消化管造影検査, 超音波検査, 血管造影検査で腹腔内に嚢胞を有する巨大な腫瘍を認めたが, 確定診断はつかなかった。

経皮的腫瘍生検所見: 暗血性の液体を吸引し, 細胞診ではmacrophageが多数認められたが悪性細胞は検出されなかった。尚, 細菌も検出されなかった。

以上より一部嚢胞性の巨大腹部腫瘍として1978年1月12日開腹術を施行した。

手術所見: 腹腔内に血性腹水が少量貯留し, 血管が怒張した大網に覆われた嚢腫様の腫瘍が腹腔の大部分を占めていた。大網を切離すると胃前庭部大彎側の胃壁から発生した胃外発育型腫瘍であった。腹腔内の諸臓器を圧排していたが肝, 横行結腸, 後腹膜など周辺臓器への浸潤はなく, 腹腔内に転移巣も認めなかった。胃局所切除にて腫瘍を摘出した。

摘出標本の肉眼所見: 表面に不規則な凹凸を認め, だるま型を呈していた。大きさ34×30×24cm, 重量

1997年3月13日受付 1997年6月16日採用

図1 a. 摘出標本：大きさ34×30×24cm, 重量5,500gで、表面に不規則な凹凸を認めた。b. 摘出標本断面像：実質性部分と嚢胞が多く混在した部分を認めた。

a
b

5,500gであった。胃壁との付着面は直径2cmであった(図1a)。断面像は実質性で弾性軟、黄褐色調の部分と嚢胞が多く混在し暗赤色調な部分とが認められた。嚢胞の内容は暗血性であった(図1b)。

病理組織学的所見(原発巣)：腫瘍細胞の核は主として楕円形ないし多角形で、多くの細胞では核の外周に透明にぬけた胞体を認めた。また胃との接着部には平滑筋細胞を認めた。細胞密度は比較的高く、細胞異型は中等度であったが核分裂像は認めなかった。免疫組織学的にはデスミン、アクチン、ビメンチンは陽性、ケラチン、S-100は陰性であった。以上より胃平滑筋芽細胞腫と診断した(図2a)。

術後経過は良好で術後24日目に退院。以後、外来にて経過観察していた。

1984年1月(原発巣摘出6年後)直腸指診でダグラス窩に弾性軟な母指頭大の壁外腫瘍を触知し、骨盤CTにて骨盤内腫瘍を認め、腹膜再発を疑い、経過観察した。同年9月のCTにて腫瘍の増大を認め、ダグラ

図2 a. 病理組織所見(原発巣)：多くの細胞では核の外周に透明にぬけた胞体を認めた(HE染色, ×200)。b. 病理組織所見(腹膜再発巣)：初回手術時と類似し、胃平滑筋芽細胞腫の像であった(HE染色, ×200)。

a
b

ス窩腹膜再発と確診した。他臓器への浸潤や転移を認めないので、手術目的で入院となった。

第2回入院時現症：身長153cm, 体重57kg, 眼結膜に貧血, 黄疸は認めず。表在リンパ節は触知せず。直腸指診にてダグラス窩に弾性軟な母指頭大の腫瘍を触知した。

第2回入院時血液検査所見：軽度の白血球増多以外末梢血, 生化学検査にて異常を認めず。腫瘍マーカーはCEA 1.2ng/mlと正常であった。

骨盤CT検査：1984年3月の骨盤CTでは直腸の右腹側, 精囊の背側に1.5×1.0cmの境界明瞭な腫瘍を認めた。同年9月の骨盤CTで同部位に2.5×1.5cmの腫瘍を認め、同年3月の骨盤CTと比較すると、明らかに増大していた(図3a, 図3b)。腹部CTでは肝転移など他に異常所見は認めなかった。

1984年10月15日胃平滑筋芽細胞腫のダグラス窩腹膜再発の診断にて開腹術施行。

図3 a, 骨盤 CT (3月), b, 骨盤 CT (9月): 骨盤 CT (9月) では直腸右腹側, 精囊背側に, 同年3月の骨盤 CT と比較すると, 明らかに増大した2.5×1.5cm の境界明瞭な腫瘤を認めた。

a
b

手術所見: ダグラス窩やや右側に2.5cm 大の境界明瞭, 表面平滑な腫瘍を認めた。直腸など他臓器浸潤はなく, 腫瘍摘出術を施行した。腹腔内を検索すると大網に3cm 大の腫瘍を2カ所に認め, それを摘出した。他に病変は認めなかった。

病理組織学的所見 (腹膜転移巣): 前回の胃平滑筋芽細胞腫の病理組織像と類似しており, 胃平滑筋芽細胞腫の腹膜再発と診断された。細胞密度, 細胞異型は前回とほぼ同様であったが, 核分裂像 (mitotic index) は200倍率50視野で2~3であった (図2b)。

その後厳重に経過観察しているが再手術後現在まで12年間再発の徴候は認めていない。

考 察

胃平滑筋芽細胞腫は平滑筋腫と平滑筋肉腫の中間に位置するものとされてきたが, 現在では低悪性度の平滑筋肉腫, または平滑筋肉腫の1型として位置付けられている報告が多い。松下ら⁴⁾は胃平滑筋芽細胞腫の10年生存率は予後の記載がある本邦報告例69例では88.8%で予後良好と報告しているが, 丸岡ら⁵⁾は本邦報告304例の集計で27例 (8.9%) に他臓器直接浸潤または転移を認め, 予後の記載がある転移14例の2年生存率は36%と, 転移をきたすと予後不良であったとしている。

最近, 転移例の報告は増加している。胃平滑筋芽細胞腫は丸岡らの304例に新たに調べ得た34例を加えて

表1 腹膜転移を伴った胃平滑筋芽細胞腫の本邦報告例

症例	報告者	報告年	年齢, 性	部位	発育型	最大径 (cm)	mitosis×200 (個/HPF)	腹膜転移以外の因子	腹膜転移時期	腹膜転移巣切除の有無	初回手術後の予後
1	梅津 ⁶⁾	1977						リンパ節, 肝	同時性	無	
2	増田 ⁷⁾	1979	13M	胃上部				肝, 肺	同時性	無	1ヵ月死
3	大久保 ⁸⁾	1980	58M	胃中部	胃外	12	4	無	同時性	有	8ヵ月生
4	菱沼 ⁹⁾	1980	64F	胃上部	胃内外	20	陽性	直接浸潤, リンパ節	同時性	無	1ヵ月死
5	Kimura ¹⁰⁾	1981	29F	胃上部	胃外	7		無	同時性	無	2ヵ月死
6	木村 ¹¹⁾	1984	76M	胃上部	胃外	8		無	同時性	無	
7	稲垣 ¹²⁾	1986	22M	胃下部	胃外	14		無	同時性	有	7ヵ月生
8	徳原 ¹³⁾	1990	50M	胃上中部	胃外	32	3~7	肝	異時性	無	22ヵ月生
9	丸岡 ⁵⁾	1991	58M	胃上部	胃内外	2.3	0	直接浸潤	同時性	有 (腫瘍残存)	18ヵ月生
10	佐溝 ¹⁴⁾	1993	50M	胃中部	胃内外	19	75	初回: 直接浸潤, リンパ節再発: 肝	異時性 (6ヵ月)	無	9ヵ月死
11	山本 ¹⁵⁾	1993	65M	胃中部	胃内外	12	散見	無	異時性 (3年)	有 (腫瘍残存)	4年死
12	大橋 ¹⁶⁾	1994	71M	胃中部	胃外	19	15	無	異時性 (4年, 8年)	有	10年生
13	自験例	1996	51M	胃中部	胃外	34	0	無	異時性 (6年)	有	16年生

本邦報告例338例中、他臓器直接浸潤、または転移を認める、いわゆる悪性胃平滑筋芽細胞腫は34例(10.1%)であった。直接浸潤は8例、転移部位は重複しているが、肝15例、腹膜13例、リンパ節8例、局所1例、肺1例、骨1例、脾1例、鼠径部1例であり、肝転移と腹膜転移が多かった。今回、腹膜転移を認めた13例^{5)~16)}を検討したが(表1)、その特徴としては、'90年代に入って増加、年齢は13歳~76歳(平均50.6歳)と幅広く、性別は男性9例女性3例(不明1例)と男性に多い、部位は胃上中部が11例と多く、発育形式は全て胃外型または胃内外型で胃内型は認めず、腫瘍径は2.3~34cm(平均最大径16.3cm)で8例が10cm以上で大きいものが多いが胃内外型の2.3cmと小さいものでも腹膜播種があるのが注目される、mitosisを認めない、または少なくとも再発している、転移因子は腹膜転移以外にも肝転移などを重複している症例は6例(46.1%)と多く、それらの予後は不良である、などが挙げられる。男性で胃上中部に発生した胃外型、または胃内外型の大きな腫瘍では腹膜再発の危険性があると考えられた。腹膜再発時期に関しては同時性8例(62%)、異時性5例(38%)であり、同時性は予後が悪い傾向にあった。これは他臓器転移合併例が多く、腹膜播種転移巣の切除もできないものが多いので予後不良になると思われた。北川ら¹⁷⁾は胃平滑筋芽細胞腫肝転移の本邦報告例15例を検討しているが、中年男性で胃上部に発生し、胃外性に大きく発育するのが特徴であるとした。これは検討した腹膜転移例とほぼ同様な特徴で、肝転移と腹膜転移とを区別する因子ははっきりせず、上述した特徴をもつ症例は肝または、腹膜転移の危険性を念頭に置くべきと思われた。

異時性腹膜再発5例のうち自験例を含め3例に再発巣切除が施行され、うち2例は根治的再切除が可能であった。具体的には、1例は大橋らの症例¹⁶⁾で初回手術後4年と8年目に腹膜再発し、それらをそれぞれ再切除し、初回手術後10年間長期生存中である。もう1例は自験例であった。この2例は初回手術後長期間経過して再発しており、このようにslow growingに再発した例は再発巣に対し、根治的に再切除ができる可能性があり、再切除できれば長期生存を期待できることが示唆された。

腹膜再発の原因として、北村ら¹⁸⁾は胃平滑筋肉腫術後6年目の腹腔内再発症例で、腹腔鏡検査生検時の腫瘍細胞の散布が腹膜再発の原因と報告しているが、自験例でも手術操作中に腫瘍細胞を撒布したか、経皮的

腫瘍生検施行時に腫瘍細胞を撒布した可能性もあると考えられた。

悪性度の判定基準として一般的には核分裂像(Mitotic index)が用いられる。しかし、HE標本による核分裂像の判定には個人差が大きく、核崩壊像や濃縮像が分裂像と誤認されやすく、再現性がなかったとする報告¹⁹⁾もあり、最近ではKi-67抗原、PCNA染色、AgNOR染色、DNA ploidyなどが細胞増殖能をみる手段として用いられ、悪性度の指標として有用であると報告されている¹⁰⁾²⁰⁾²¹⁾。また免疫特殊染色法では自験例はデスミン、アクチンともに陽性であったが、平滑筋由来の腫瘍が悪性化するとデスミン陰性、アクチン陽性となるとの報告もある²²⁾。胃平滑筋芽細胞腫は全体的にはlow malignancyで予後はよい疾患とされるが、転移再発を認め、予後不良な症例も存在する。これらの鑑別法が検討課題である。

結 語

(1) 原発巣切除6年後に腹膜再発をきたし、再発巣切除後長期生存中の1例を経験した。

(2) slow growingに再発した例は再発巣に対しても根治術ができる可能性があり、根治術可能例は長期生存を期待できることが示唆された。

尚、本症例は初回手術の状況について1980年に加藤らが当時報告例では最大のものとして報告した²³⁾。

文 献

- 1) Martin JF, Bazin P, Feroldi J, et al: Intramural myoid tumors of the stomach: Microscopic considerations on 6 cases. *Ann Anat Path* 5: 484—497, 1960
- 2) Stout AP: Bizarre smooth muscle tumor of the stomach. *Cancer* 15: 400—409, 1962
- 3) 吉田 明, 小針頼晴, 渡辺庄造: 胃平滑筋肉腫と思われた1例について。日医放線会誌 24: 446—447, 1964
- 4) 松下一之, 坂本昭雄, 碓井貞仁他: 胃外有茎性発育を示した胃平滑筋芽細胞腫の1例。日消外会誌 23: 75—79, 1990
- 5) 丸岡 彰, 千々岩芳春, 三澤 正他: 悪性胃平滑筋芽細胞腫の1例。Gastroenterol Endosc 34: 1332—1339, 1992
- 6) 梅津佳英, 石岡国春, 佐藤 明他: 胃の平滑筋芽細胞腫の1例。日臨細胞会誌 16: 131—132, 1977
- 7) 増田幸久, 浅木 茂, 知念功雄他: 急激な転帰をとった胃 leiomyoblastoma の1例。日消病会誌 76: 2146, 1979

- 8) 大久保史明, 松田正和, 池井 聡他: 腹膜転移を伴った悪性胃平滑筋芽細胞腫の1例. 消外 3: 335—341, 1980
- 9) 菱沼正一, 大塚秋二郎, 梅園 明他: 胃に原発した, いわゆる Malignant Leiomyoblastoma と考えられる1症例について. 日消病会誌 77: 1175, 1980
- 10) Kimura O, Kaibara N, Tamura H, et al: Comparative study on the nuclear DNA content of leiomyoma, leiomyoblastoma and leiomyosarcoma of the stomach and small intestine. Jpn J Surg 11: 428—432, 1981
- 11) 木村彰彦, 谷田 理, 佐々木義夫他: 平滑筋芽細胞腫が疑われた胃粘膜下腫瘍の1例. 日臨細胞会誌 23: 723, 1984
- 12) 稲垣 優, 成末允勇, 高橋 侃他: 胃平滑筋芽細胞腫の2例. 広島医 39: 1599, 1986
- 13) 徳原太豪, 酒井克治, 木下博明他: 術前診断しえた巨大な胃平滑筋芽細胞腫の1例と本邦報告220例の検討. 日臨外医会誌 51: 316—321, 1990
- 14) 佐溝政広, 中村 毅, 多淵芳樹他: 胃平滑筋芽細胞腫の1例. 日消外会誌 26: 864—868, 1993
- 15) 山本誠己, 田伏克惇, 坂口雅宏他: 特異な再発形態をとった胃平滑筋芽細胞腫の1治験例. 日臨外医会誌 54: 2086—2091, 1993
- 16) 大橋龍一郎, 横山伸二, 栗田 啓他: 腹腔内再発病巣の切除により10年間生存中の胃平滑筋芽細胞腫の1例. 臨外 49: 775—778, 1994
- 17) 北川雄一, 田近徹也, 亀岡伸樹他: 同時性肝転移をきたした胃平滑筋芽細胞腫の1例. 日臨外医会誌 57: 384—388, 1996
- 18) 北村正次, 荒井邦佳, 宮下 薫他: 術後6年目に腹腔内再発を来した壁外性発育型の胃平滑筋肉腫の1例. 日消外会誌 23: 2793—2797, 1990
- 19) Silverberg SG: Reproducibility of the mitosis count in the histologic diagnosis of smooth muscle tumors of the uterus. Hum Pathol 7: 451—454, 1976
- 20) 松田圭二, 渡辺英伸, 西倉 健他: 新しい視点からみた胃筋原性腫瘍の病理. 胃と腸 30: 1109—1124, 1995
- 21) 二階堂孝, 山田哲也, 下田忠和他: 胃原発平滑筋肉腫における悪性度診断の客観的指標の検索. 胃と腸 30: 1125—1132, 1995
- 22) Evans DJ, Lampert IA, Jacobs M: Intermediate filaments in smooth muscle tumors. J Clin Pathol 36: 57—61, 1983
- 23) 加藤知行, 紀藤 毅, 山田栄吉他: 胃外性に発育した巨大な胃の leiomyoblastoma の1例. 癌の臨 26: 87—91, 1980

A LONG SURVIVING CASE OF LEIOMYOBLASTOMA OF THE STOMACH AFTER RESECTION OF RECURRENT FOCI IN THE RETROPERITONEUM

Takao TAKAHASHI, Tomoyuki KATO, Takeshi MORIMOTO, Yoshitaka YAMAMURA,
Tsuyoshi KITO and Shigeo NAKAMURA*

Department of Gastrointestinal Surgery and Clinical Laboratory, Aichi Cancer Center Hospital

A 45-year-old man at time of initial visit had undergone a laparotomy with a diagnosis of having an abdominal tumor, when a pedunculated tumor of extraluminal growth was found out at the greater curvature of antrum of the stomach. partial excision of the stomach including the tumor was carried out. The excised tumor was 34 × 30 × 24 cm in size and 5,500 g in weight. Histopathologically it was leiomyoblastoma of the stomach. Six years after the initial operation, a digital examination of the rectum and pelvic CT revealed an intrapelvic tumor. Then 6 months later, an enlargement of the tumor was confirmed on CT. A laparotomy was conducted with a suspicion of a recurrence in the Douglas pouch, and two tumors located in the Douglas pouch and greater omentum were found and extirpated. Histopathologically they were peritoneal recurrence of the leiomyoblastoma of the stomach. There has been no sign of recurrence as of 12 years after the reoperation.

It has been believed that gastric leiomyoblastoma is a relatively rare entity of low grade of malignancy. We encountered a patient with the disease who experienced a peritoneal recurrence 6 years after the initial operation, and is still having a long recurrence-free normal life after the removal of the recurrent lesions. It is thought that slowly growing peritoneal recurrence of gastric leiomyoblastoma can be resected in some cases and a long survival can be also expected after removal of the recurrent foci.