症 例

食道原発性腺様嚢胞癌の1例

大分医科大学第2外科, 同 臨床検査医学講座*

村 上 信 一 橋 本 剛 武 野 慎 祐

挾間田 伸 介 内 田 雄 三 横 山 繁*

稀な原発性食道腺様嚢胞癌の1例を経験したので報告する。症例は48歳女性で、嚥下障害を主訴に受診した。食道造影で病変はEiにあり、内視鏡検査で門歯列より30～38cmの前壁に凹凸不整な隆起性病変を認めた。生検診断は腺様嚢胞癌で、胸部食道全摘術を施行した。切除標本では、6.5×4.0cmの中央に潰瘍を伴う2型病変を認めた。病理組織診断は食道腺様嚢胞癌、mp, n2, stage IIIであった。免疫組織化学染色ではアクチンが陽性であった。電顕所見では微絨毛を認めた。術後経過は順調で、補助化学療法を施行した。食道腺様嚢胞癌は一般に予後不良と言われているが、術後3年経過した現在も再発の徴候もなく外来通院中である。

索引用語：食道癌，腺様嚢胞癌

結 言

食道原発の悪性腫瘍はそのほとんどが扁平上皮癌であり、腺様嚢胞癌は非常に稀である。また臓器別にみても、腺様嚢胞癌は主に唾液腺および気管・気管支腺に発生するとされており、食道原発の腺様嚢胞癌は極めて稀である。今回われわれは食道原発の腺様嚢胞癌の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：48歳，女性。

主訴：嚥下障害。

家族歴：父親が肺癌で死亡。

既往歴：46歳で子宮筋腫の手術。

現病歴：平成6年4月頃より嚥下障害が出現し、徐々に増強するため同年8月8日近医を受診した。上部消化管造影と上部内視鏡検査で食道のEi領域に腫瘍を認め、内視鏡下の生検で腺様嚢胞癌の診断を受け、同年8月22日手術目的で当科に入院した。

入院時現症：体格中等度，貧血，黄疸なし，頸部にリンパ節を触知せず，腹部は平坦，軟で圧痛なく，肝脾腫を認めず，腹部腫瘤を触知しなかった。

入院時血液生化学検査：血液生化学検査に異常を認めず，腫瘍マーカーも正常範囲内であった。

食道造影検査：食道Ei領域の右側前壁に長径8cm

の表面不整の隆起性病変がみられ，中にバリウムの貯留を伴った陥凹を認めた（図1）。

食道内視鏡検査：門歯より30cmから38cmにかけて右側前壁に半周性の中央に陥凹を有する2型の病変を認めた（図2）。ヨード染色ではその病変部は不染帯を呈した。その病変部より採取した生検の診断は腺様嚢胞癌であった。

以上より食道原発の腺様嚢胞癌と診断し，平成6年9月5日手術を施行した。

手術所見：右開胸開腹下に胸部食道全摘と胸腹部リンパ節郭清を行い，胃管を用いて高位胸腔内吻合術を施行した。肉眼的にNo. 7リンパ節に転移が見られた。さらに，同年9月28日に2期的に両側頸部リンパ節郭清を行った。肉眼的に頸部リンパ節に転移は見られなかった。したがって，術中所見はMo, Plo, N2 (No. 7), AoのStage IIIであった。

切除標本：Ei領域に大きさ6.5×4.0cmの2型の腫瘍を認めた（図3）。肉眼的に外膜浸潤は見られなかった。

病理組織所見：腫瘍は固有筋層まで浸潤していた。その形態は篩状構造を呈し（図4），腫瘍細胞は核が明るく核小体が明瞭な腺上皮細胞様のclear cellと胞体に乏しく類紡錘型で核の濃染した筋上皮細胞様のdark cellの2種類の腫瘍細胞が見られた。PAS染色では小嚢腔内にPAS陽性の粘液様物質を認めた。

図1 食道造影所見：Ei領域の右側前壁に表面が凹凸不整で中に陥凹を伴った隆起性病変を認める。

図2 内視鏡所見：食道右側前壁に凹凸不整な隆起性病変を認める。

図3 切除標本肉眼所見：Ei領域に大きさ6.5×4.0 cmの2型の腫瘍を認める。

図4 病理組織所見：充実胞巣構造，腺管様篩状構造を呈して増殖する腫瘍細胞を認める（H.E. 染色，×130）。

図5 病理組織所見：腺管腔内に淡青色に染色される粘液性物質を認める（alcian blue 染色，×260）。

Alcian blue 染色でも小囊腔内に淡青色に陽染する粘液様物質を認めた(図5)。抗アクチン抗体を用いた

免疫染色ではアクチン陽性の筋上皮細胞様の腫瘍細胞が散在性に見られた(図6)。電顕所見では腫瘍細胞質

図6 免疫組織学的所見：アクチン陽性の類紡錘型の腫瘍細胞を散在性に認める（アクチン、×260）。

図7 電顕所見：腫瘍細胞内に発達したミトコンドリアと小腺腔内に突出する microvilli を認める（×5,000）。

内に発達したミトコンドリアと小腺腔内に突出した microvilli を認めた（図7）。食道癌取り扱い規約¹⁾に従い、adenoid cystic carcinoma, mp, ie (－), inf β , ly1, v1, n2 (No.7), ow (－), aw (－) で stage III と診断された。

術後経過：術後経過は順調であった。術後化学療法は CDDP (75mg), 5Fu (750mg) を使用し合計3クール施行した。術後3年を経過したが再発の徴候なく、経過は良好である。

考 察

原発性食道腺様嚢胞癌は1950年 U.S. Navy Medical School の Color Atlas of Pathology²⁾ に初めて報告された疾患である。その発生頻度は食道癌行体の 0.06～0.1%³⁾ であり、自験例を含めて検索しえた限りでは本邦報告例は72例である^{4)～6)}。当教室における食道腺様嚢胞癌の発生頻度は平成9年10月で全食道癌症例368例中1例で0.27%であり、他施設の報告例³⁾ に比べてやや高率であった。年齢は49歳から87歳で男女比は5.4：1で男性に多くみられ、そのほとんどが胸部中・下部食道に好発するといわれている⁴⁾。本症例は48歳と報告例に比して若干若く、女性である点が特徴的であった。

一方、発生母地は食道腺導管由来説⁷⁾と食道上皮由来説⁸⁾があるが、結論はまだ出ていない。食道腺導管由来説の根拠は腫瘍が早期の段階では腫瘍の主座は粘膜下層にある点⁹⁾、腫瘍細胞は腺上皮細胞様の clear cell と筋上皮細胞様の dark cell の2つの細胞成分より構成されている点¹⁰⁾、免疫組織学的に筋上皮様細胞にアクチン陽性所見を認める点¹¹⁾などがあげられる。本症例でも H.E. 染色で clear cell と dark cell の2つの細

胞を認め、アクチンの免疫染色でアクチン陽性細胞が散在性に見られたことより、食道腺様嚢胞癌の発生母地は食道腺導管由来説が有力と思われた。電顕所見ではこれまでの報告例¹⁰⁾¹¹⁾と同様にミトコンドリアの発達、microvilli、腺腔形成が見られた。特に microvilli と腺腔形成が認められたことは本腫瘍が腺癌の性質を有していることを示唆している点で興味ある所見と思われた。治療は放射線感受性が低いことより¹²⁾外科的切除が第一選択と思われる。また、腫瘍は発生時にはすでに粘膜下層まで癌が浸潤し、高度の脈管侵襲を伴っているため比較的早期に血行性転移を起こしやすいといわれている⁹⁾。したがって化学療法を含めた集学的治療が必要と思われるが、その化学療法は一般的に CDDP と 5Fu の投与が有効であるといわれている¹³⁾。本症例も術後 CDDP と 5Fu の化学療法を行い、深達度 mp の進行癌であるにもかかわらず現在再発なく術後3年6カ月生存している。しかし、過去の報告例¹⁴⁾によれば、原発性食道腺様嚢胞癌の平均生存期間は約10カ月とされ、そのほとんどが2年以内に死亡しており、予後は極めて不良である。しかしながら、食道腺様嚢胞癌は本症例の様にリンパ節転移や遠隔転移がなければ切除と術後の化学療法によってある程度の予後が期待できることより、早期発見、早期手術を行うことができればその予後は必ずしも絶望的ではないと思われた。

結 語

48歳女性の稀な原発性食道腺様嚢胞癌の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) 食道疾患研究会編：食道癌取り扱い規約. 第8版, 金原出版, 東京, 1992, p2—29
- 2) U.S. Navy Medical School: Color Atlas of Pathology, JB Lippincott, Philadelphia, 1950, p295
- 3) Suzuki H, Nagayo T: Primary tumors of the esophagus other than squamous cell carcinoma. *Int Adv Surg Oncol* 3: 73—109, 1980
- 4) 小熊将之, 渋谷哲男, 内山喜一郎他: 食道原発の早期腺様嚢胞癌の1例. *日臨外医会誌* 58: 800—806, 1997
- 5) Morisaki Y, Yoshizumi Y, Hiroyasu S, et al: Adenoid cystic carcinoma of the esophagus: Report of a case and review of the Japanese literature. *Surg Today* 26: 1006—1009, 1996
- 6) Kitada H, Yamaguchi K, Takashima M, et al: Adenoid cystic carcinoma of the esophagus: Report of a case. *Surg Today* 27: 238—242, 1997
- 7) Sweeney EC, Cooney T: Adenoid cystic carcinoma of the esophagus. A light and electron microscopic study. *Cancer* 45: 1516—1525, 1980
- 8) Benisch B, Toker C: Esophageal carcinomas with adenoid cystic differentiation. *Arch Otolaryng* 96: 260—262, 1972
- 9) 吉田泰憲, 岡村 健, 矢野公一他: 食道原発性腺様嚢胞癌2例の検討. *日胸外会誌* 40: 334—339, 1992
- 10) Sawataishi M, Karaki Y, Nagata T, et al: Primary adenoid cystic carcinoma of the esophagus: A light and electron microscopic study. *J Jpn Bronchoesophagol Soc* 46: 227—234, 1995
- 11) Sawataishi M, Sakamoto T, Karaki Y, et al: Primary adenoid cystic carcinoma of the esophagus—An immunohistochemical and electron microscopic study. *Med Electron Microsc* 28: 146—155, 1995
- 12) 藤田博正, 掛川暉夫, 熊谷義也他: 食道に発生した腺様嚢胞癌—2例の症例報告と文献的考察—. *癌の臨* 25: 235—241, 1979
- 13) 安部俊弘, 佐伯俊宏, 丹黒 章他: 集学的治療により長期生存が得られた原発性食道腺様嚢胞癌の1例. *日臨外医会誌* 57: 2698—2702, 1996
- 14) 磯野可一: 食道癌の臨床. 中外医学社, 東京, 1988, p253—266

A CASE OF ADENOID CYSTIC CARCINOMA OF THE ESOPHAGUS

Shin-ichi MURAKAMI, Tsuyoshi HASHIMOTO, Shinsuke TAKENO, Shinsuke HAZAMADA,
Yuzo UCHIDA and Shigeo YOKOYAMA*

Departments of Surgery II and Laboratory Medicine*, Oita Medical University

A rare case of adenoid cystic carcinoma of the esophagus is reported. A patient was a 48-year-old woman was admitted to the hospital because of dysphagea. Esophagography revealed a lesion at Ei, and an endoscopy demonstrated an uneven elevated lesion on the anterior wall of the esophagus 30–38 cm from the incisors. An adenoid cystic carcinoma was diagnosed by a biopsy and a total thoracic esophagectomy was performed. The surgical material showed a 6.5 × 4.0 cm 2 type lesion with an ulcer in the center. The histopathological diagnosis of esophageal adenoid cystic carcinoma (mp, n2, stage III) was made. Immunohistological staining for actin was positive in the tumor. Electron micrograph showed microvilli. Esophageal adenoid cystic carcinoma is generally thought to be associated with a poor prognosis, but the patient has not developed recurrence and has been followed as an outpatient as of three years after surgery.