

小腸との穿通をきたし膿瘍形成を伴った 小腸平滑筋肉腫の一例

池田 純, 樋口 恒司, 谷口 史洋

京都第一赤十字病院外科*

A Case of Leiomyosarcoma of Small Intestine with Abscess Formation Due to Penetration to the Small Intestine

Jun Ikeda, Kouji Higuchi and Fumihiko Taniguchi

Department of Surgery, Kyoto First Red Cross Hospital

抄 録

小腸へ穿通し腫瘍内に膿瘍形成を伴った小腸平滑筋肉腫の一例を経験したので報告する。症例は76歳女性。貧血と腹痛の精査目的に当院紹介となった。左下腹部に圧痛を伴う腫瘍を触知し、腹部超音波・CT検査にて約10cm大の腫瘍を認めた。小腸透視では壁外性圧排像を呈していたため、GISTなどの粘膜下腫瘍を疑った。小腸内視鏡を含めた精査を予定していたが、高熱・腹痛増強とともに炎症反応の増悪を認めたため緊急入院となった。再検腹部CT検査では腫瘍の軽度増大を認め空腸への穿通にともなう膿瘍形成を疑った。絶飲食と抗生剤投与を行ったが改善なく入院4日目に緊急開腹手術を施行した。Treitz 靱帯より約30cm 肛門側の小腸に10cm超の腫瘍を認めた。明らかな他臓器浸潤はなく、腫瘍を含めた小腸部分切除を行った。病理所見では漿膜下層を主体とする紡錘形細胞の増生と、小腸への穿通に伴う膿瘍形成を認めた。免疫染色にて SMA(+), desmin(+), c-kit(-), CD34(-), S-100(-)であり平滑筋肉腫と診断した。術後16日目に軽快退院となった。現在術後約10カ月で無再発経過中である。穿孔や穿通を伴う小腸平滑筋肉腫の報告はまれである。貧血や腹痛の原因として小腸平滑筋肉腫も念頭におく必要がある。

キーワード: 平滑筋肉腫, 小腸腫瘍, 穿通。

Abstract

We report a case of leiomyosarcoma of the small intestine with abscess formation due to penetration into the small intestine. A 76-year-old woman was referred for further examination of anemia and abdominal pain. Ultrasound and CT examination showed a tumor with a diameter of approximately 10cm. Small-intestinoscopy suggested a submucosal tumor such as GIST. Though intestinoscopy was scheduled, she was urgently hospitalized due to high fever. Re-abdominal CT should an abscess formation due to penetration into the small intestine. 3 days after ineffective conservative therapy, emergency laparotomy was performed. A tumor with a diameter of over 10cm was revealed on approximately 30 cm anal site of jejunum from Treitz's ligament. With no apparent invasion through other organs, partial small intestinal resection with the tumor was performed. Histological examination showed proliferation of spindle cells in the subserosal layer with abscess formation due to penetration into the small intestine.

Immunostaining showed SMA (+) desmin (+) c-kit (-) CD34 (-) and S-100 (-) led to the diagnosis of leiomyosarcoma. She was discharged 16 days after operation and has no recurrent sign currently 10 months after it. Cases of leiomyosarcoma of small intestine with perforation or penetration are scarcely reported. We should take leiomyosarcoma of small intestine into consideration as the cause of anemia and abdominal pain.

Key Words: Leiomyosarcoma, An intestinal tumor, Penetration.

はじめに

小腸平滑筋肉腫は小腸 GIST に比してまれな疾患であり、その穿孔例・穿通例の報告は少ない。今回我々は、小腸へ穿通し腫瘍内に膿瘍形成を来した小腸平滑筋肉腫の一例を経験したので報告する。

症 例

患者：76歳，女性

主訴：腹痛・発熱

既往歴：高血圧。

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：左側腹部痛・貧血と便潜血陽性を認め精査目的に当院消化器科を紹介受診された。上部消化管内視鏡・大腸内視鏡で異常を認めなかったが、腹部超音波・腹部 CT・小腸造影検査にて小腸 GIST を疑った。小腸内視鏡や血管造影などの精査目的に入院予定であったが、腹痛増強と発熱を認めたため緊急入院された。約 1 年前にも貧血の精査目的に上部消化管内視鏡・大腸内視

鏡を施行していたが、異常を認めていなかった。

現症：身長 153 cm 体重 51.5 kg 体温 39.5°C 血圧 125/71 mmHg 脈拍 113/min 腹部は平坦・軟で、左側腹部から下腹部にかけ手拳大の腫瘤を触知し、圧痛を伴っていた。

血液生化学所見 (Table 1)：軽度の貧血とともに WBC 16220/ μ l, CRP 12.6 mg/dl と炎症反応の上昇を認めた。CEA/CA19-9 は正常値であった。

上部消化管内視鏡検査・大腸内視鏡検査：特に所見を認めず。

腹部超音波検査 (Fig. 1)：臍左部から下腹部にかけ 105×77×82 mm の腫瘤を認めた。内部は充実性部分と嚢胞性部分が混在し不均一であった。

小腸造影検査 (Fig. 2)：Treitz 靱帯より約 30 cm の空腸に壁外性圧排所見を認めた。口側小腸の拡張は認めなかった。

腹部 CT 検査 (Fig. 3a)：空腸に径 10×8.4 cm 大の内部不均一な腫瘤を認めた。造影不良域と嚢胞性部分が混在していた。腸間膜リンパ節腫大も認めた。

Table 1. Blood biochemical findings on admission

TP	g/l	6.6	WBC	/ μ l	16220 ↑
GOT	IU/l	12	RBC	$\times 10^4$ / μ l	405
GPT	IU/l	8	Hb	g/dl	10.3 ↓
LDH	IU/l	174	Ht	%	31.9 ↓
ALP	IU/l	232	PLT	$\times 10^3$ / μ l	337
T-Bil	mg/dl	1.9 ↑	CEA	ng/ml	0.7
AMY	IU/l	25	CA19-9	U/ml	4.4
BUN	mg/dl	13			
Cr	mg/dl	0.9			
Na	mEq/l	133 ↓			
Cl	mEq/l	101			
K	mEq/l	4.1			
CRP	mg/dl	12.6 ↑			

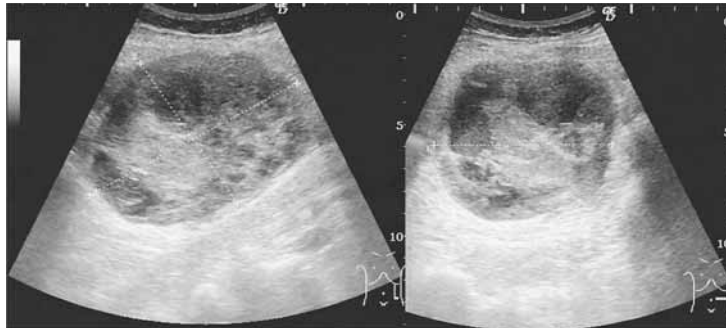


Fig. 1. Abdominal ultrasonography showed 105×77×82 mm heterogeneous tumor which has a mix of internal solid and cystic parts.

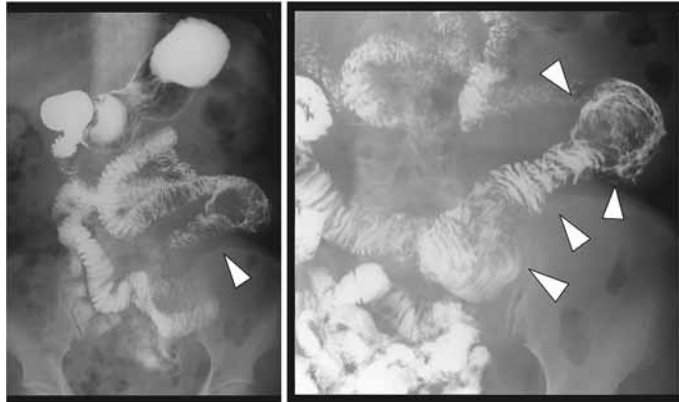


Fig. 2. Small intestinegraphy showed extramural compression (arrowhead) of the jejunum approximately 30 cm anal site from Treitz's ligament without expansion of the proximal small intestine.



Fig. 3a. Abdominal CT showed a 10×8.4 cm heterogeneous mass of the jejunum.

初回から5日後のCT再検査 (Fig. 3b) で、腫瘍は径11×9.6 cmと軽度増大し小腸透視時の造影剤が残留していた。周囲脂肪組織の濃度上昇とダグラス窩に少量の腹水を認めた。

術前経過：入院後、絶食・抗生剤投与による保存的治療を行ったが、炎症所見の改善は改善せず、腫瘍の穿破を危惧し、入院4日目に緊急手術施行した。

手術所見 (Fig. 4)：正中切開にて開腹。Treitz 靭帯から約30 cmの空腸に10 cm超の腫瘍を認め、少量の混濁腹水・腹壁・下行結腸・大網との癒着を認めた。小腸部分切除と吻合再建を行った。手術時間は121分、出血量500 gであった。

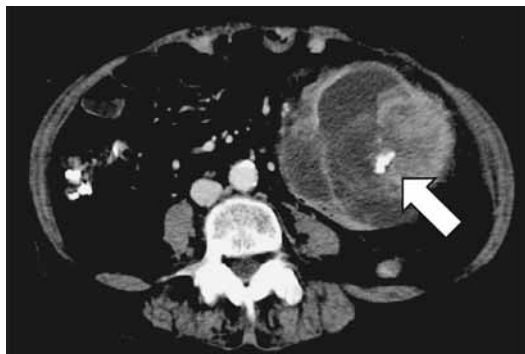


Fig. 3b. Abdominal CT showed an 11×9.6 cm enlarged tumor including the contrast agent (arrow), small amount of ascites in the Douglas' pouch and the increase in the concentration of the surrounding fat tissue.

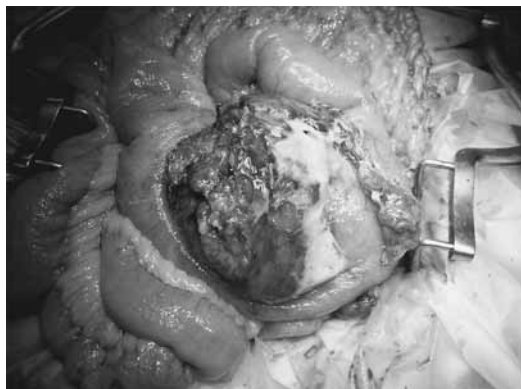


Fig. 4. Surgical findings: Over 10 cm tumor was revealed on approximately 30 cm anal site of jejunum from Treitz's ligament, which has perforation site with pus leakage.

術後経過：経過良好で，術後16日目に軽快退院された．術後約10カ月を經過し，再発徴候なく通院中である．

病理組織学的所見：(肉眼所見)(Fig. 5)空腸粘膜下に13×11×10 cm大の腫瘍を認め一部粘膜面に露出する非上皮性と思われる部分を認め腫瘍内との瘻孔を形成していた．(組織所見)(Fig. 6a/b/c)粘膜下から漿膜下層を主体として

紡錘形細胞の増生を認めた．細胞密度の高い部分では細胞異型と核分裂像を著明に認めた(41/10 HPF)．嚢胞状変性や壊死・膿瘍形成・肉芽形成も認めた．免疫組織学的検査ではSMA(+)(Fig. 6c), desmin(+), c-kit(-), CD34(-), S-100蛋白(-)であり，平滑筋肉腫と診断した．壁にリンパ節1個に転移を認めた．



Fig. 5. Macroscopic findings: 13×11×10 cm jejunal submucosal tumor was partially exposed to the surface of jejunal mucosa which has fistula into the tumor.

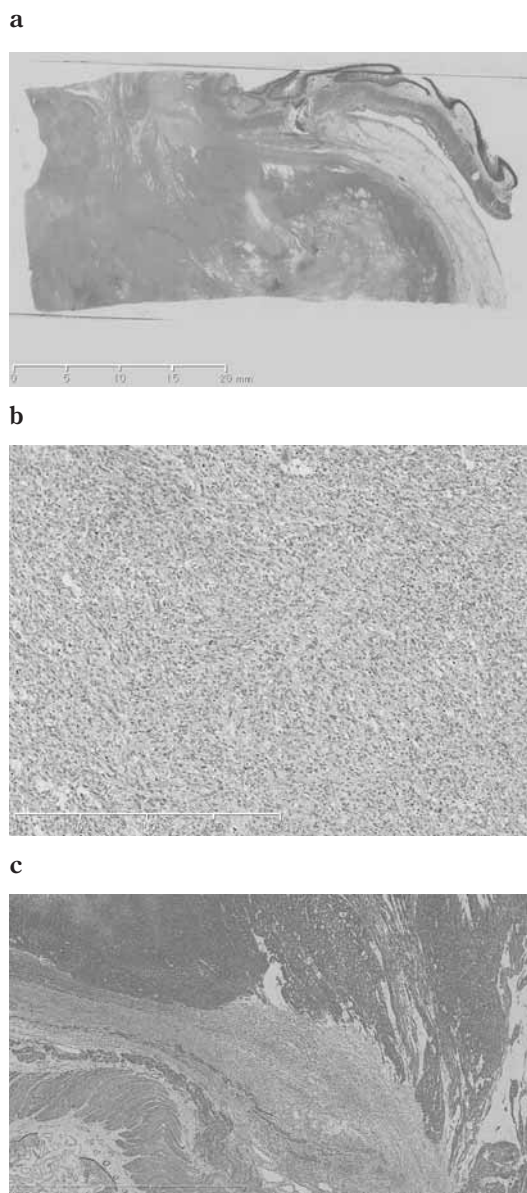


Fig. 6a/b/c. Microscopic findings: Spindle cell proliferation with cellular atypia and mitotic figures (41/10HPF) was found in the submucosal layer (b) Abscess formation, granulation, cystic degeneration and necrosis were also found (a) Immunohistochemistry showed SMA(+)(c)

考 察

本症例のように壁外性発育した小腸腫瘍は腸閉塞症状を起しにくいと考えられる。また貧

血から消化管出血を疑っても上部消化管内視鏡・大腸内視鏡検査で異常を認めなければ確定診断できなくなることもある。本症例でも約1年前から貧血を主訴に来院されていたが上部消化管内視鏡・大腸内視鏡検査で異常を認めなかったため経過観察となっていた。この時点で小腸造影検査や腹部超音波・腹部CT検査を行っていれば発見できていた可能性があるが、結果的には膿瘍形成による腹痛が出現してから精査を開始している。本症例は管外性に発育した小腸腫瘍が浸潤し小腸粘膜側に露出、出血による貧血をきたし、さらに壊死した腫瘍内と交通(穿通)したのち膿瘍を形成し、腹痛・発熱をきたしたものと思われる。

近年、カプセル内視鏡やダブルバルーン小腸内視鏡が普及してきているものの¹⁴⁾、スクリーニング目的に用いるのは限られた施設のみと思われ、早期発見には小腸造影・腹部超音波検査や腹部CT検査を活用すべきと思われる。

小腸腫瘍の頻度に関する報告⁵⁾では、原発性小腸悪性腫瘍は、腺癌32.6%、悪性リンパ腫30.4%、平滑筋肉腫29.1%の割合となっており、胃や大腸と比較して非上皮性腫瘍が多いのが特徴である。また平滑筋肉腫のうち消化管原発の占める割合は60~80%との報告があり、それによると小腸は胃とともに好発部位である⁶⁾。小腸平滑筋肉腫の5年生存率は約40~50%⁷⁾と不良で、現在小腸平滑筋肉腫にたいして有効な化学療法はなく、治療は外科切除に頼るところが多い。またGISTと異なりリンパ節転移の頻度が高いが、至適郭清範囲や郭清の意義については今後の検討課題である⁸⁾。

平滑筋肉腫は肉眼・組織形態的にGISTとの鑑別は困難で、免疫染色でSMAやdesminが陽性、S100蛋白およびc-kit陰性により診断される⁹⁾。この鑑別診断が可能となったのは1998年以降であるため、それ以前に平滑筋肉腫と診断されていた症例にはGISTが含まれていると考えられる。医学中央雑誌で「小腸平滑筋肉腫」「穿孔」をキーワードとして1998年以降で検索したところ報告例は8例¹⁰⁾¹⁷⁾と少なく、「小腸平滑筋肉腫」「穿通」では報告例を認めなかった。

これら 8 例中 1 例は大量下血によるショック症例で、7 例はいずれも腹痛を主訴とし穿孔性腹膜炎の診断で緊急開腹術を施行している。術式はいずれも小腸腫瘍とそれに伴う穿孔と診断され小腸切除術を施行している。穿孔部位は口側小腸が 2 例、腫瘍そのものが 5 例であった。それ以前の 1985 年から 1997 年で同様に検索したところ報告例は「穿孔」21 例・「穿通」0 例であり、1998 年以降の報告例より多く、この中には GIST が含まれているものと推定される。GIST と鑑別された平滑筋肉腫である本症例は比較的稀な症例と考えられる。

小腸平滑筋肉腫は本症例のように貧血の原因

となる場合がある。上部消化管内視鏡・大腸内視鏡検査で異常がないにもかかわらず便潜血陽性であれば、小腸腫瘍を念頭におき、腹部 CT・小腸造影・ダブルバルーン小腸内視鏡検査¹⁸⁾などで小腸病変を検索すべきと考える。早期診断し早期の治療につなげることが重要である。

結 語

小腸へ穿通し腫瘍内に膿瘍形成を伴った小腸平滑筋肉腫の一例を経験した。小腸平滑筋肉腫は稀であるが、貧血や腹痛の原因として念頭におく必要がある。

文 献

- 1) 小林 望, 吉竹直人, 平原美孝, 関口隆三.【実践的カプセル内視鏡】カプセル内視鏡による小腸腫瘍の診断. 消内視鏡 2010; 22: 337-343.
- 2) 林 芳和, 矢野智則, 山本博徳.【一般内科診療に役立つ消化器内視鏡ガイド コンサルテーションのポイントから最新知識まで】消化器内視鏡のこの 10 年間のブレイクスルー バルーン内視鏡. Medicina 2009; 46: 1156-1161.
- 3) 長屋匡信, 赤松幸次.【今や常識 小腸内視鏡 カプセルとバルーン内視鏡の最新知識】小腸内視鏡の歴史と進歩. 消内視鏡 2008; 20: 1496-1503.
- 4) 矢野智則, 山本博徳, 砂田圭二郎, 新城雅行, 宮田知彦, 菅野健太郎.【小腸疾患治療の進歩】小腸疾患内視鏡治療の進歩. 日消病会誌 2009; 106: 19-25.
- 5) 八尾恒良, 八尾建史, 真武弘明, 古川敬一, 永江隆, 本村 明, et al.【小腸腫瘍 分類と画像所見】小腸腫瘍 最近 5 年間 (1995~1999) の本邦報告例の集計. 胃と腸 2001; 36: 871-881.
- 6) 亀岡信悟, 板橋道朗.【消化器疾患 (Ver. 2) state of arts 胃・腸】主要疾患 現況・病態・診断・治療 消化管の平滑筋腫ならびに平滑筋肉腫. 医のあゆみ 1998; 別冊: 405-408.
- 7) 番場嘉子, 板橋道朗, 亀岡信悟.【腫瘍外科治療の最前線】小腸・腹膜の腫瘍性疾患ほか 小腸の悪性腫瘍 悪性リンパ腫, 膵癌, 平滑筋肉腫. 外科治療 2007; 96: 482-485.
- 8) 大高和人, 森田高行, 藤田美芳, 岡村圭祐, 山口晃司, 阿部元輝, et al.急速な増悪経過をたどった小腸平滑筋肉腫の 1 例. 日消外会誌 2009; 42: 399-403.
- 9) 日本癌治療学会. がん診療ガイドライン. GIST 診療ガイドライン. <http://jsco-cpg.jp/guideline/03.html>. 2008-07-11
- 10) 久保田健介, 赤星朋比古, 東 秀史, 田原光一郎, 松本敏文, 武内秀也, et al. 急性腹症にて発症した小腸原発平滑筋肉腫の一例. 大分医会誌 2005; 23: 48-51.
- 11) 倉田昌直, 大島祐二, 高垣俊郎, 深尾 立. 食物嵌頓による穿孔性腹膜炎をきたした小腸平滑筋肉腫の 1 例. 日臨外会誌 2000; 61: 509.
- 12) 大西久司, 村林紘二, 赤坂義和, 楠田 司, 高橋幸二, 小川朋子, et al. 小腸平滑筋肉腫による穿孔性腹膜炎手術後 5 年目に巨大肝転移, 腹膜播種をきたし再発巣切除を行った 1 例. 三重医 2000; 43: 125-130.
- 13) 岡崎 誠, 村井紳浩, 興梠 隆. 炎症性及び腫瘍性小腸疾患を原因とした緊急手術 4 例の検討. 外科 1999; 61: 792-795.
- 14) 徳嶺章夫, 砂川 亨, 阿嘉裕之, 仲宗根由幸, 中江晴彦, 砂川一哉, et al. 穿孔性腹膜炎で発症した小腸平滑筋肉腫の 1 例. 沖縄那覇病誌 1998; 44-47.
- 15) 東 崇明, 尾嶋英紀, 野地みどり, 伊藤佳之, 加藤俊夫. 穿孔性腹膜炎を生じた小腸平滑筋肉腫の 1 例. 日臨外会誌 1999; 60: 3335.
- 16) 米山公康, 池. 穿孔性腹膜炎をきたした小腸平滑筋肉腫の一例. 日腹部救急医会誌 1998; 18: 159.
- 17) 高見沢潤一, 服部龍夫, 小林陽一郎, 宮田完志, 加藤万事, 米山文彦, et al. 穿孔性腹膜炎をきたした小腸平滑筋肉腫の 1 例. 日臨外会誌 1998; 59: 541.
- 18) 高倉有二, 岡島正純, 小島康知, 桧井孝夫, 池田

聡, 吉満政義, et al. ダブルバルーン小腸内視鏡で
診断しえた小腸平滑筋肉腫の1切除例. 日消外会誌 2007; 40: 1114.