

幽門輪温存腹腔鏡下幽門側胃切除を行った 極めてまれな胃間葉系腫瘍の1例

久保田真理¹⁾ 沖津 宏¹⁾ 松本 大資¹⁾ 古川 尊子¹⁾ 木原 歩美¹⁾
 松岡 裕¹⁾ 浜田 陽子¹⁾ 湯浅 康弘¹⁾ 石倉 久嗣¹⁾ 木村 秀¹⁾
 阪田 章聖¹⁾ 吉岡 一夫²⁾ 山下 理子³⁾ 藤井 義幸³⁾

1) 徳島赤十字病院 外科

2) 田岡病院 外科

3) 徳島赤十字病院 病理部

要 旨

67歳，女性．平成22年3月，黒色便を自覚し当院を受診．上部消化管内視鏡検査で胃角部小弯前壁寄りに頂部に出血を伴い潰瘍を有する腫瘍径3 cm 大の胃粘膜下腫瘍を認め，GIST が疑われた．手術適応と判断し幽門輪温存腹腔鏡下胃切除を施行した．永久標本で肉眼的に蔓やぶどうの房状と表現される形態をとっており，通常のGISTではみられない形態であった．また，免疫染色では腫瘍細胞はc-kit⁻，CD34⁻，desmin p⁺，S-100 protein⁻であった．以上よりGISTは否定的であり平滑筋肉腫も考えられたが，免疫染色性が近く，同様の形態をとる腫瘍にPlexiform Fibromyxoma（蔓状繊維粘液腫）があげられた．これは良性腫瘍であり予後も良好であるが本例は異なる点があり，必ずしも予後良好でないと考えられた．局所は根治切除できているが，術後化学療法に効果的なものはなく，慎重に経過観察中である．

キーワード：Plexiform Fibromyxoma（蔓状繊維粘液腫），幽門輪温存腹腔鏡下幽門側胃切除

はじめに

今回我々は，極めてまれな胃間葉系腫瘍の1例を経験したので報告する．

症 例

患 者：67歳，女性

主 訴：黒色便，頻脈

既往歴：糖尿病（内服治療中）

家族歴：特記事項なし

嗜好歴：飲酒・喫煙なし

現病歴：平成22年3月上旬より頻脈が出現し近医を受診し当院循環器内科へ紹介された．心精査では異常なく，結膜に貧血がみられ血液検査でも貧血を認めたため，貧血に伴う頻脈を疑われ消化管精査目的に消化器科に転科となった．

現 症：身長149.0cm，体重60.0kg，血圧117/71mmHg，脈拍116/min 整，体温36.5度，SpO₂ 100% (room air)．

意識清明，結膜貧血あり・黄染なし，悪心なし，呼気に血性なし，心音・呼吸音に異常なし．腹部は平坦で軟，剣状突起直下に違和感あり，自発痛・圧痛なし，腫瘤触れず，腸蠕動音は正常．下腿浮腫なし，体表リンパ節を触れず．

検査所見：

血液検査（表1）：軽度貧血を認める他は異常所見を認めない．

上部消化管内視鏡検査（図1）：胃体下部小弯前壁寄りに直径3 cm 程度の半球状の粘膜下腫瘍様隆起が単発．隆起はおおむね正常粘膜に覆われており，急峻な立ち上がりを示し，bridging foldを伴い，表面に陥凹した潰瘍面を数個有し，滲出性出血を認めた．

インジゴカルミン散布では，腫瘍表面の粘膜は平滑で，周囲と同様の正常粘膜と思われた．

NBI拡大観察でも異常血管増生は認めなかった．腹部造影CT（図2）：胃体下部小弯に腫瘤様の壁肥厚，内部には造影効果の強い部位がみられ，管外への突出が疑われた．明らかな遠隔転移，リンパ節腫大は認めなかった．

表1 血液検査成績

末梢血		生化学			
Hb	11.0 g/dl	T-bil	1.1 mg/dl	Na	138 mEq/l
RBC	372×10 ⁴ /μl	AST	17 U/L	K	3.6 mEq/l
WBC	5,310 /μl	ALT	13 U/L	Cl	106 mEq/l
Plt	20.7×10 ⁴ /μl	ALP	172 U/L	CRP	0.01 mg/dl
		γGTP	10 U/L	PG	121 mg/dl
		LDH	215 U/L	HbA1c	6.3 %
凝固線溶		CK	85 U/L		
PT	99 %	T-Cho	186 mg/dl	腫瘍マーカー	
APTT	32.5 sec	TG	35 mg/dl	CEA	1.2 ng/ml
Fib	251 mg/d	TP	6.7 g/dl	AFP	3.50 ng/ml
		BUN	13 mg/dl	CA19-9	<2 U/ml
		Cr	0.43 mg/dl		
		UA	4.0 mg/dl		

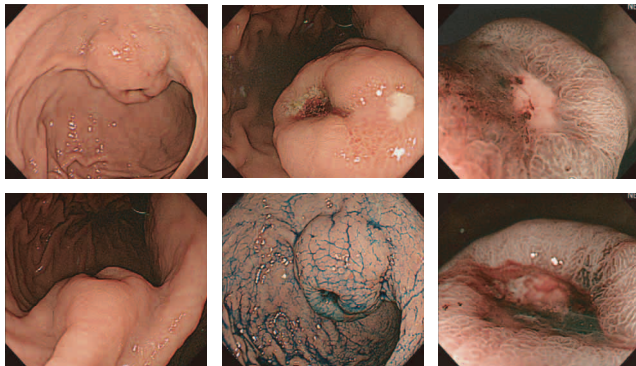


図1 上部消化管内視鏡検査

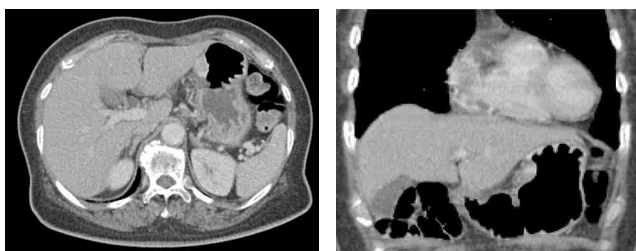


図2 腹部造影 CT

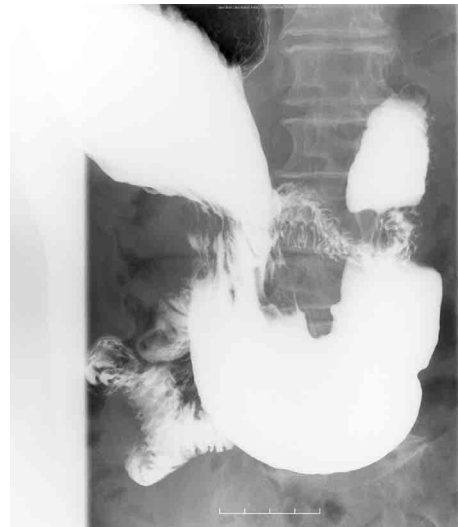


図3 胃透視検査

胃透視検査（図3）：腹臥位にて胃体下部に円形で境界明瞭な透亮像があり，bridging foldを伴っていた。

臨床経過

以上より非上皮性腫瘍，出血性 GIST(内腔発育型)と診断し，PPIを処方し21日後に内視鏡検査を再検査した（図4）。腫瘍は初回検査時よりも平坦化し，サイズもやや縮小。潰瘍部からボーリング生検を行ったが腫瘍細胞はえられなかった。また，同時に行った超音

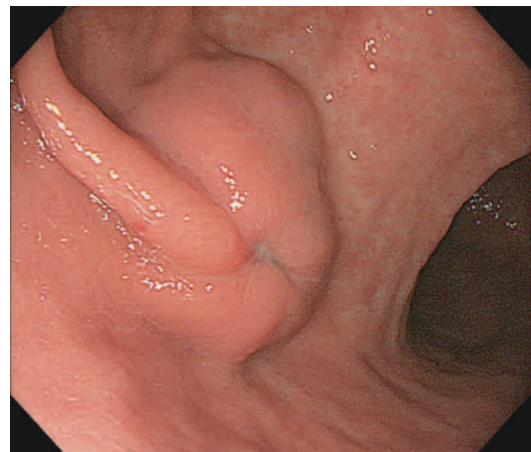


図4 上部内視鏡検査（PPI内服後）

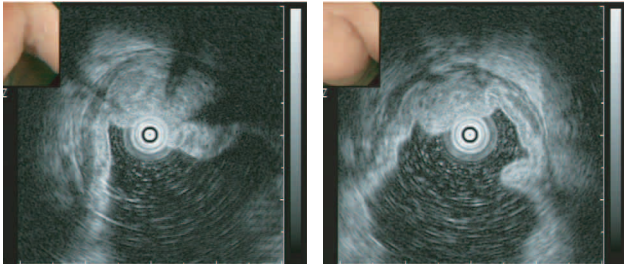


図5 超音波内視鏡

波内視鏡(図5左)では、腫瘍は第3層(=粘膜下層)を首座としたややモザイク状エコーを呈しており、(図5右)内部には点状の無エコー域もみられた。第4・5層(固有筋層・漿膜下層)との境界は保たれていた。

生検での診断はできなかったが、出血を伴う粘膜下腫瘍であり、それに伴う貧血、頻脈の症状も出現していたため手術適応と判断した。GIST診療ガイドライン¹⁾の外科治療の原則に従い、本症例は腫瘍径3cm大の腫瘍であり、腹腔鏡下でマージンを確保し完全切除可能であると考えた。また、発生部位が胃角部小弯前壁であることより臓器機能温存を考慮して術式は幽門輪温存腹腔鏡下幽門側胃切除術とした。術後は合併症などなく術後7日で退院となった。

術中所見(図6)

術前検査で確認したとおり胃体下部小弯の漿膜に腫瘍が突出していると思われる変化を認めた(①)。右胃体網動静脈末梢(②)、小弯側右胃動脈(③)の切除を行い、左胃動静脈(④)を剥離し左胃動静脈下行

枝(⑤)を切離した。血管の処理に引き続いて幽門輪より口側4cmをEnd-GIA 60mm×2で切離(⑥⑦)。後壁を連続縫合、前壁をgambee法にて縫合(⑨)。生理食塩水1Lで洗浄し、閉腹、手術終了した。

病理

摘出標本では腫瘍は著明に縮小していた(図7)。腫瘍は肉眼的に周囲組織と明らかに区別でき、通常のGISTではみられない蔓のような、ぶどうの房状の形態であった(図8)。強拡大像では、腫瘍は漿膜側まで突出してきており、深達度はSE(図9)。また、一部核異型の強い細胞も見られた(図10)。免疫染色ではGISTの90%以上でみられるc-kitは陰性、リスク分類に使われるMIB-1 indexは4%であった(図11)。

考 察

術前検査からはGISTを強く疑う所見であったが病理所見よりGISTではなくplexiform fibromyxoma疑い、と診断した。これはMiettinenによって提唱された胃粘膜下腫瘍の疾患分類である²⁾。特徴は表2に示す通りである。この中でも、胃前庭部発生であること、plexiformな増殖パターンを呈することが最大の特徴といえる。本症例はplexiformなパターンの増殖である点は共通するが胃体下部に病変が存在すること、また先ほどのような核異型の強い細胞があることの2点で、Miettinenの発表と異なっている。そのため、plexiform fibromyxomaでは切除後に全例が再発・転

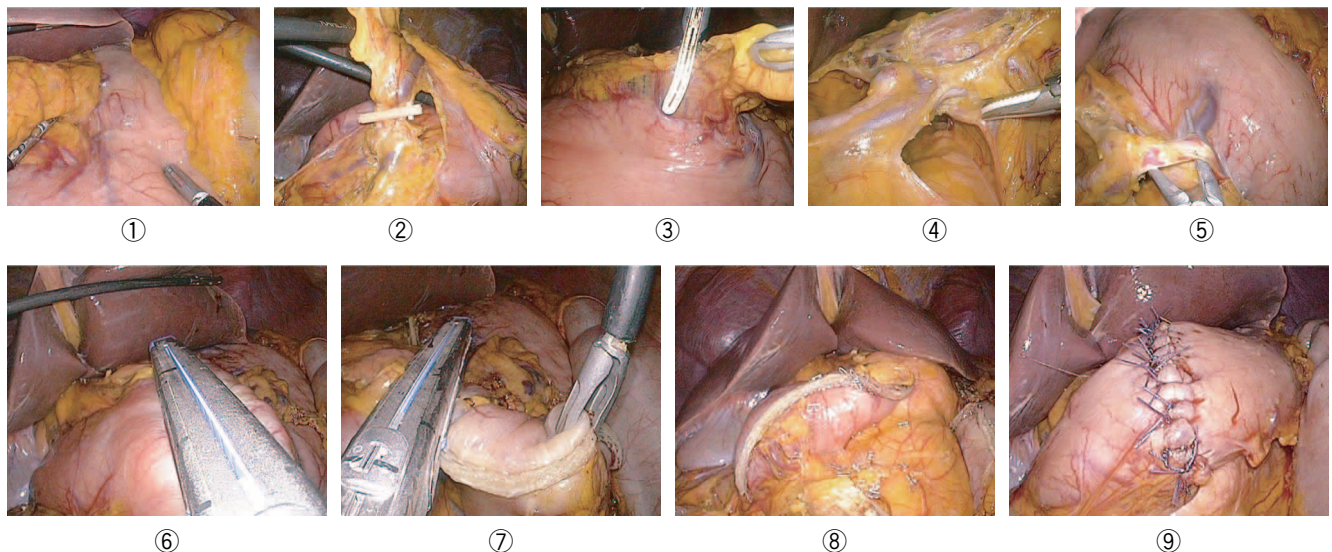


図6 術中所見



図7 摘出標本

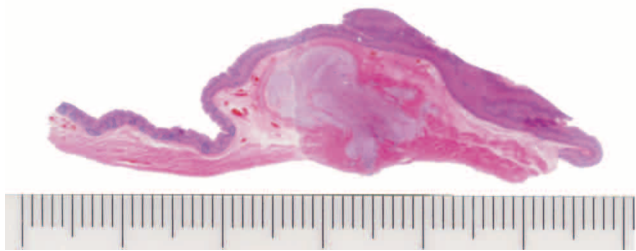


図8 病理標本 (弱拡大)

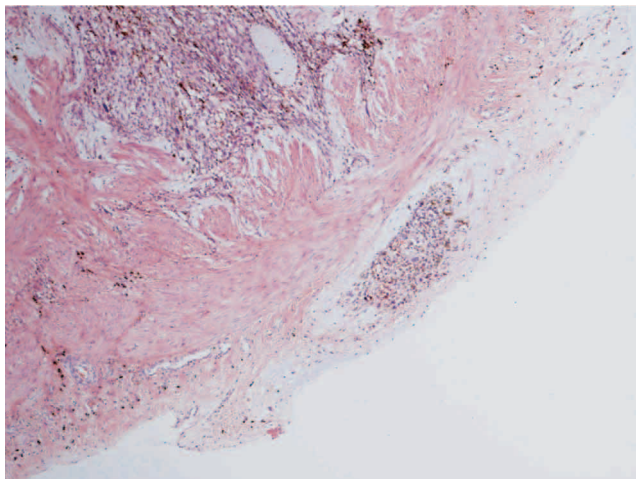


図9 病理標本 (強拡大)

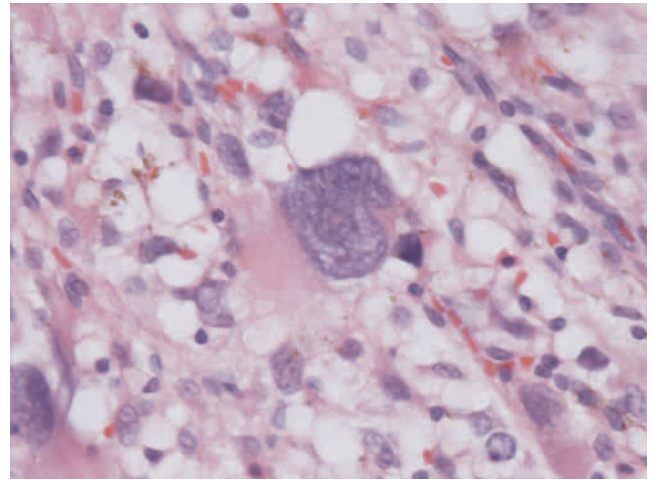


図10 病理標本 (強拡大)

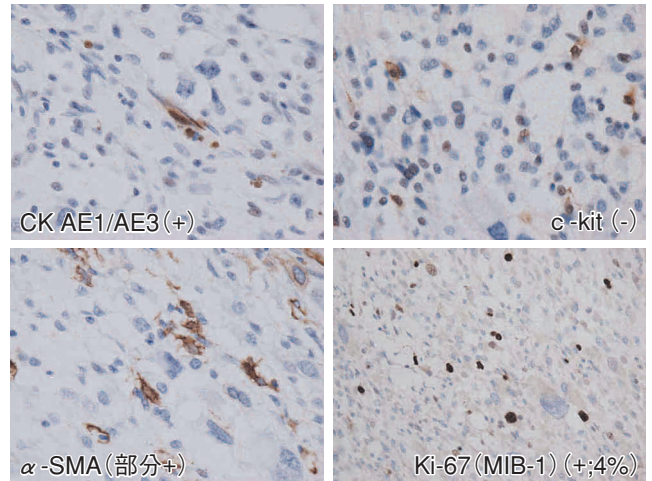


図11 免疫染色

表2 Plexiform fibromyxoma (Markku Miettinen によって提唱された胃粘膜下腫瘍の疾患分類)

- * 胃間葉系腫瘍の10/4200例 (米 AFIP)
- * 男：女 = 5：7, 7～75歳 (平均 41歳)
- * 腫瘍径：3～15cm (平均 5.5cm)
- * 全例胃前庭部, その半数にて胃外結合組織や十二指腸球部へ進展
- * 全例再発・転移なし, 予後良好
- * 免疫染色は α -SMA で陽性, 他の c-kit 等は陰性
- * KIT, PDGFR α 遺伝子変異なし
- * plexiform な増殖パターン

(Am J Surg Pathol 2009; 33:1624-1632)

移を認めておらず, 予後は良好であるが, 本症例は必ずしも良好でないかもしれないと考え, 慎重に経過観察中である。

- ・有症状、腫瘍径3 cm、胃角部小弯前壁に発生した胃 GIST 疑いの胃粘膜下腫瘍に対して、幽門輪温存腹腔鏡下幽門側胃切除術にて根治切除しえた1例を経験した。
- ・切除標本の病理診断により GIST ではなく、Miettinenらの報告した Plexiform Fibromyxoma とよく似た構築をとる極めてまれな胃間葉系腫瘍であった。
- ・本症例は Plexiform Fibromyxoma の特徴とは異なる点があり、また細胞形態などからも境界悪性が疑われるため慎重な経過観察を行っている。

- 1) 日本癌治療学会, 日本胃癌学会, GIST 研究会編「GIST 診療ガイドライン第2版補訂版」, 金原出版, 東京, 2010
- 2) Miettinen M, Makhoulouf HR, Sobin LH et al: Plexiform fibromyxoma: a distinctive benign gastric antral neoplasm not to be confused with a myxoid GIST. *Am J Surg Pathol* 33: 1624-1632, 2009

A Very Rare Case of Gastric Mesenchymal Tumor Treated by Pyloric Ring-preserving Laparoscopic Distal Gastrectomy

Mari KUBOTA¹⁾, Hiroshi OKITSU¹⁾, Daisuke MATSUMOTO¹⁾, Takako FURUKAWA¹⁾, Ayumi KIHARA¹⁾, Yutaka MATSUOKA¹⁾, Yoko HAMADA¹⁾, Yasuhiro YUASA¹⁾, Hisashi ISHIKURA¹⁾, Suguru KIMURA¹⁾, Akihiro SAKATA¹⁾, Kazuo YOSHIOKA²⁾, Michiko YAMASHITA³⁾, Yoshiyuki FUJII³⁾

- 1) Division of Surgery, Tokushima Red Cross Hospital
- 2) Division of Surgery, Taoka Hospital
- 3) Division of Pathology, Tokushima Red Cross Hospital

The patient was a 67-year-old woman. In March 2010, she visited our hospital, complaining of black stool. Upper gastrointestinal endoscopy revealed a submucosal tumor of 3 cm in diameter accompanied by bleeding and ulcer in the apex of the anterior wall along the lesser curvature of the gastric angle. The woman was, thus, suspected of having a gastrointestinal stromal tumor (GIST). Surgery was indicated and pyloric ring-preserving laparoscopic gastrectomy was carried out. Macroscopic examination of the permanent tissue specimen suggested a vine-like form or hydatidiform, unlike ordinary GIST. When immunostained, tumor cells were c-kit-negative, CD34-negative, desmin p-positive, and S-100 protein-negative. On the basis of these findings, GIST was judged as unlikely and leiomyosarcoma seemed probable. However, plexiform fibromyxoma (a tumor whose similar morphological responses to immunostaining and morphological features are closer to those noted in this case) seemed most likely. Plexiform fibromyxoma is a benign tumor and known to have a favorable prognosis. The tumor in the present case differed slightly from this tumor, and the prognosis of this case cannot be definitely predicted to be favorable. Although the local lesion has been radically resected, no valid means of postoperative chemotherapy is known for this kind of tumor. Careful follow-up seems essential from now on.

Key words: Plexiform Fibromyxoma, pyloric ring-preserving laparoscopic distal gastrectomy

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 16: 106-110, 2011