

嚢胞を形成し、臍・十二指腸組織からなる 胃錯誤腫の1例

大 浪 亜希子, 枝 幸 基, 寺 井 志 保
及 川 圭 介, 高 橋 信 孝, 宮 崎 敦 史
菅 原 和 彦, 矢 島 義 昭, 杉 山 幸 一*
佐 山 淳 造**, 酒 井 信 光**, 長 沼 廣***

はじめに

異所性の組織とは奇形発生様式の一つである位置の異常であり、臓器から組織の異常までみられる。組織学的異常には組織構成の量的な異常と部位及び質的な異常の場合とがある。前者は本来の位置における組織奇形に由来する過誤腫(hamartoma)と呼ばれるものと、胎生中に退化消失すべき胎児性組織が遺残している場合とがある。後者は胎生中に細胞群ないし組織の一部が正常連絡から離断されて他の臓器、組織中に出現した場合で、このような組織片を異所性組織(ectopic tissue)と呼び、腫瘍状になれば錯誤腫又は分離腫(choristoma)と称されている。今回我々は嚢胞を形成し、臍、十二指腸組織の混在からなる胃錯誤腫(choristoma)の稀な1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 27歳男性

主訴: 嘔気, 心窩部痛

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 2001年8月頃より嘔気, 心窩部痛があり近医を受診し, 胃透視で異常を指摘され, 当科を紹介受診した。胃透視にて幽門前庭大弯に表面平滑な隆起性病変を認めた(図1)。上部消化管内

視鏡にて幽門前庭大弯側に巨大な粘膜下腫瘍様隆起を認め, 中心に臍窩状陥凹(DELL)を伴っていた(図2)。触診では柔らかい腫瘤であった。腹部CTにて幽門前庭に嚢胞様病変を認め, 臍仮性嚢胞も疑われた(図3)。外来で超音波内視鏡(EUS)等の精査を予定していたところ, 嘔気, 腹痛およびタール便があり, 緊急入院した。

入院時現症: BP120/80, HR80, KT36.8°C。眼

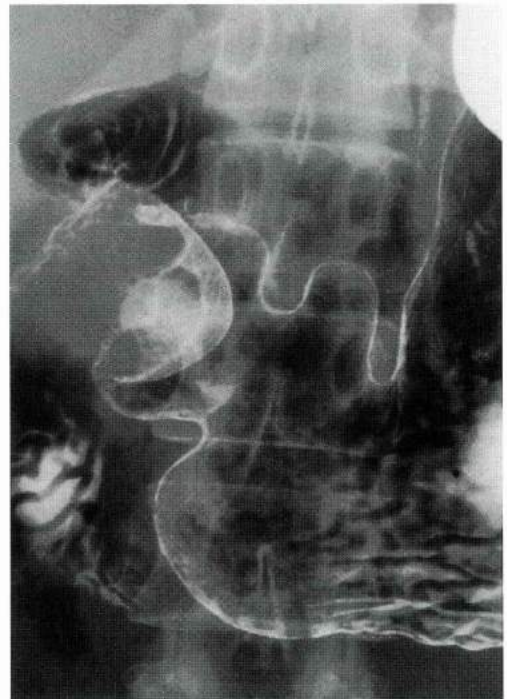


図1. 胃透視 幽門前庭大弯に表面平滑な隆起性病変を認め中心に臍窩状陥凹を伴っていた。

仙台市立病院消化器科

*JR 仙台病院消化器科

**仙台市立病院外科

***同 病理科

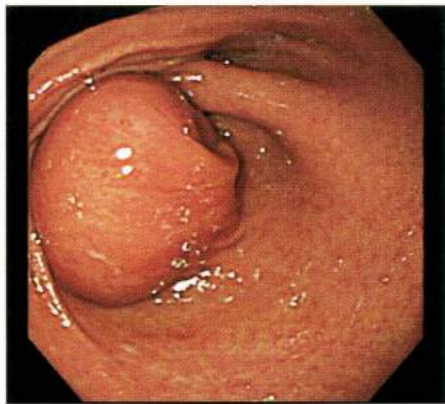


図2. 上部消化管内視鏡 幽門前庭大弯に巨大な粘膜下腫瘍様隆起を認め、中心に臍窩状陥凹を伴う。

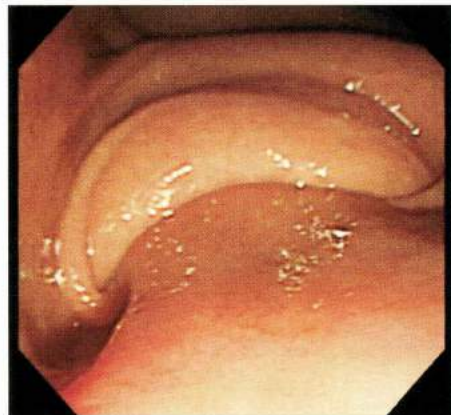


図4. 入院時上部内視鏡検査 腫瘍は十二指腸球部に嵌頓している。明らかな出血源は認めない。



図3. 腹部CT 幽門前庭に嚢胞様病変を認める。

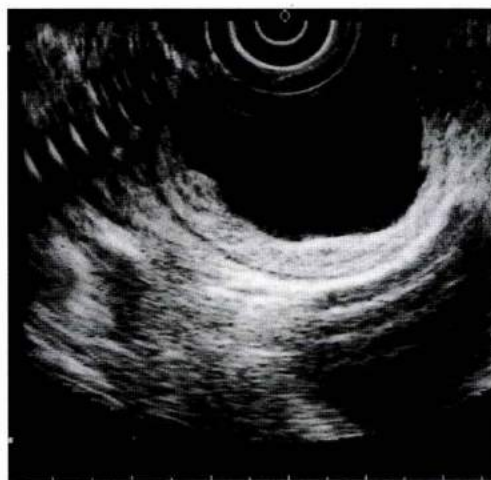


図5. 入院時EUS 腫瘍の内部は無エコーで一部壁の肥厚を伴う嚢胞様の所見である。嵌頓しているため胃壁構造との関連性は不明である。

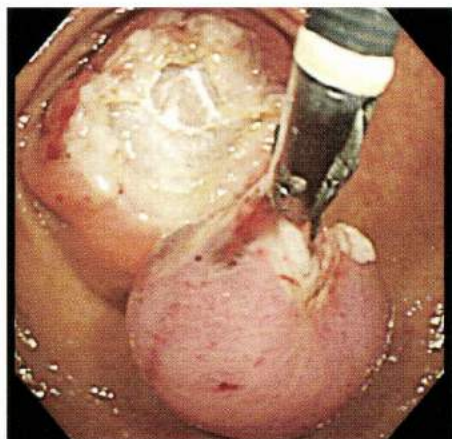
表1. 入院時検査成績

WBC	9,100/ μ l	血清 AMY	55 U/l
RBC	439 万/ μ l	尿 AMY	158 U/l
Hb	13.4 g/dl	TP	7.3 g/dl
Ht	39.5%	Alb	4.4 g/dl
Plt	25.1 \times 10 ⁴ / μ l	BUN	28 mg/dl
PT.PER	92.0%	Cre	0.8 mg/dl
APTT	36.1 sec	Na	139 mEq/l
Fib	216 mg/dl	K	4.4 mEq/l
GOT	18 IU/l	Cl	102 mEq/l
GPT	14 IU/l	Ca	9.6 mg/dl
ALP	123 IU/l	IP	3.6 mg/dl
LDH	334 IU/l	T-CHO	147 mg/dl
γ -GTP	24 IU/l	TG	52 mg/dl
T-BIL	0.8 mg/d	HDL-CHO	51 mg/dl
ZTT	5.0 KU	BS	97 mg/dl
CHE	353 IU/l	血清 CEA	0.7 ng/ml

顔結膜に貧血なし。胸部にラ音、心雑音なし。腹部は平坦軟で圧痛、反跳痛、筋性防御なし。その他特記すべき身体所見なし。

入院時検査成績：特記すべき異常所見なし（表1）。

入院後の経過：入院翌日の上部消化管内視鏡検査にて腫瘍は十二指腸球部に嵌頓していたが明らかな出血源は認められなかった（図4）。同時に施行したEUS所見では腫瘍は内部は無エコーで、



(図 6a)



(図 6b)

図 6. 表面粘膜を剝離し (図 6a) 嚢胞内を穿刺し、穿刺後隆起は消失した。(図 6b)



図 7. 生検病理組織所見 (H-E 染色) 紡錘形の細胞の増生がみられ、細胞密度は高くなく、全体に浮腫状である。

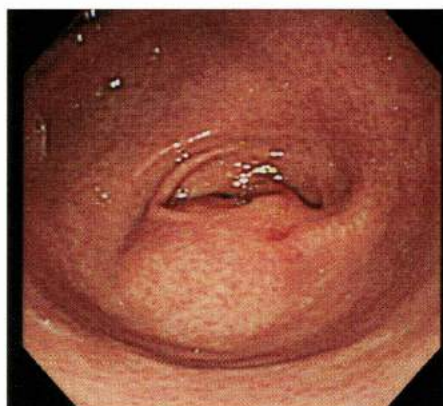


図 9. 上部消化管内視鏡 (2003/10/8)



図 8. 上部消化管内視鏡 (2002/2/13)

一部壁の肥厚を伴う嚢胞様の所見であった。胃壁由来の腫瘍と考えられたが、嵌頓しているため胃壁構造との関連は不明であった (図 5)。良性疾患が考えられ、年齢も若いことから、まず確定診断を得る目的で表面粘膜を剝離した後 (図 6a)、嚢胞内を穿刺し、隆起は消失した (図 6b)。更に被膜の一部を切除し、ここから嚢胞内壁に向かい生検鉗子で組織生検を行った。穿刺液として黄白色の排液約 11 ml を得た。穿刺液の細胞診では悪性所見はなく、AMY 9,771 IU/l、CEA 1,270.4 IU/l、CA19-9 11,869 IU/ml と高値を示した。生検組織の病理学的診断 (図 7) では、紡錘形の細胞の増生が見られ、細胞密度は高くなく、全体に浮腫状で、

SMA, c-kitとも陰性であったが粘膜下腫瘍の形態から, GISTの可能性も考えられた。穿刺後隆起は消失したため, 外来で6ヶ月ごとに経過観察したところ(図8), 約2年後の2003年10月, 再度近傍の粘膜の膨隆が見られた(図9)。EUSにて同部位の第3層内に類円形, 横長の嚢胞様構造を認め(図10a), 一部は胃壁外へも突出していた(図10b 矢印)。また近傍で第4層の肥厚も伴っていた(図10b 矢頭)。GIST, 迷入腺, 胃粘膜下異所腺, リンパ腫, 胃癌など, いずれも典型的ではなく, 一部胃壁外にも発育していることから, 手術適応と

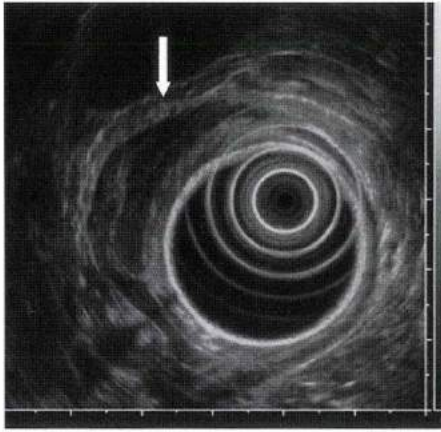


図10a. EUS 隆起部の第3層内に類円形, 横長の嚢胞様構造を認める(矢印)。

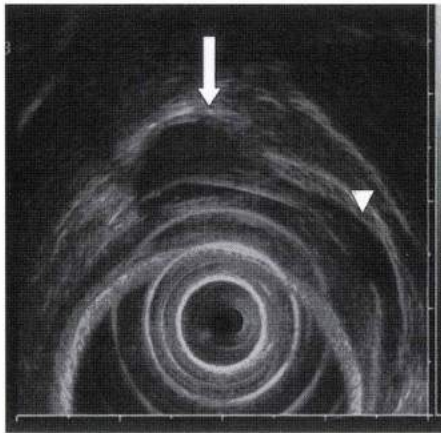


図10b. EUS 腫瘍は一部は胃壁外へも突出し(矢印), 近傍で第4層の肥厚も伴っている(矢頭)。

考え2003年12月, 胃壁部分切除による腫瘍核出術を施行した。術中所見は, 胃前庭部幽門輪のすぐ口側の大彎に4cm大の柔らかい腫瘍を触知し, 嚢胞成分は筋層を挟み壁内, 外に突出し, 粘膜面にはDELLをともなっていた。摘出された腫瘍は壁の一部に充実部分を認める嚢胞を形成していた(図11)。嚢胞は粘膜下組織に主座を置き, 最外層にわずかに胃壁筋層を認めたことから, 胃壁内の腫瘍と判断された。嚢胞内面を裏打ちする上皮はほとんどが剥離していたが, 一部に胃腺窩上皮を認めた(図12)。嚢胞壁の充実部分では腺外分泌腺, 膵導管, 十二指腸 Brunner 腺が観察された(図13)。他の充実部分では腺筋腫様様の構造も見られた(図14)。以上の所見より嚢胞形成を伴った胃錯誤腫と診断した。



図11. 摘出標本切片

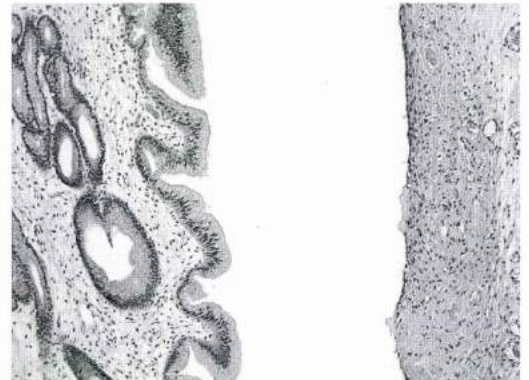


図12. 嚢胞部分の拡大像 膵組織に隣接した嚢胞壁には一部腺窩上皮の構造がみられる。

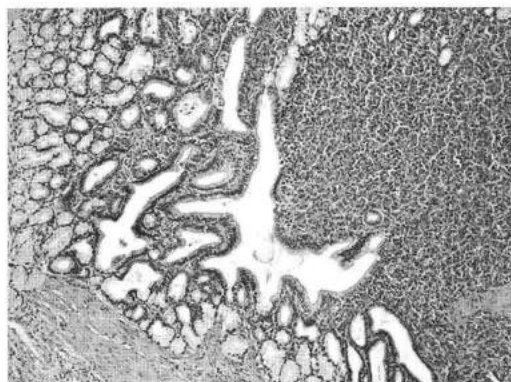


図 13. 充実性部分の拡大像 ラ氏島を持たない膵外分泌腺で一部に導管様の構造を伴い更に隣接して十二指腸腺あるいは胃幽門腺様の部分もみられる。



図 14. 充実性部分の拡大像 充実性部分に平滑筋の過形成、腺様構造を認める。

考 察

上部消化管内視鏡検査で表面に DELL を伴う粘膜下腫瘍をみた場合にあげられる疾患としては GIST や迷入膵、胃粘膜下異所腺、悪性リンパ腫、胃癌などがある。その鑑別診断には EUS による腫瘍の局在、内部エコーの観察が有用である。GIST は比較的境界明瞭な充実性腫瘍で、内部エコーは均一な低エコーまたは不均一な淡いエコースポットが点在するパターンをとる¹⁾。迷入膵は、第 3 層から 4 層に主座を有し、第 4 層よりやや高いエコーレベルの腫瘍で、ときに内部に管腔様の小構造を認めることがある²⁾。胃粘膜下異所腺は第 3 層内に無エコーから低エコー域の多発性囊腫

としてとらえられるとされる³⁾。悪性リンパ腫では第 4 層と同レベルの極めて低い内部エコーを呈する腫瘍像が特徴である。粘膜下腫瘍様を呈する胃癌としては、Lymphoid Stroma を伴うものや、粘液癌など特殊な組織型のものが知られており、内部エコーパターンはそれぞれ異なる特徴を有するが、囊胞状ではなく充実性腫瘍を形成していることが多い。今回の腫瘍は上記のいずれの所見にも典型的とは言えず、診断に苦慮した。囊胞内穿刺、生検を施行したが、穿刺液中のアミラーゼ値から迷入膵が示唆されたものの、組織診断では膵組織は得られず、確定診断には至らなかった。しかし経過観察中に腫瘍の増大傾向が見られ、1 部が胃壁外へ突出していたことから腹腔内穿破の可能性があったこと、悪性も否定できないことから腫瘍核出術を施行することとなった。

手術標本では腫瘍は異なる成分、すなわち Langerhans 島を持たない膵外分泌腺で 1 部に導管様の構造を有する部分の他に十二指腸組織、囊胞成分などが混在して成り立っていた。膵組織の存在からは迷入膵と言えるが、十二指腸腺が胃壁内に迷入している部分では胃異所性 Brunner 腺腫とも言える⁴⁾。囊胞成分は仮性囊胞あるいは導管またはその両者の混在と考えられた。

迷入膵は Heinrich により 3 型に分類され 1 型は Langerhans 島、腺房細胞、導管の 3 者を有し正常の膵組織と全く同様の構造を呈しているもの、2 型は Langerhans 島はないが、腺房細胞および導管をもつもの、3 型は Langerhans 島、腺房細胞が存在せず、平滑筋腺維の増生と導管より構成されているものである。一般に 2 型が多く 3 型はまれとされている²⁾。そして平滑筋の過形成を合併し、胃壁、十二指腸壁、空腸壁あるいはメッケル憩室にみられる Heinrich 3 型を一般に adenomyoma と呼んでいる⁵⁾。今回の腫瘍のうち膵組織の部分については 2 型に加え adenomyoma 様の成分を有するいわゆる 3 型も混在していた。腫瘍成分のうち平滑筋の過形成の部分が囊胞穿刺時の生検で採取された可能性がある。さらに同部もしくは膵外分泌腺の部分が、EUS 上、第 4 層の肥厚としてとらえられたものと考えられた。

腫瘍の組織診断として、本来の胃の構成成分とは異なる臓器の組織からなることから、過誤腫(その臓器の構成成分からなるが構成の仕方に誤りがある)ではなく錯誤腫とした。医学中央雑誌において我々が検索しえた範囲で、過誤腫の報告は散見したが胃錯誤腫についての論文はなく、きわめて稀な症例を経験したと考え、報告した。

文 献

- 1) 村田洋子 他：超音波，超音波穿刺細胞診による GIST の鑑別診断。胃と腸 **36**：1157-1162, 2001
- 2) 中根恭司 他：胃迷入腺。消化管症候群（上巻），538-541, 2001
- 3) 笠岡千孝：胃粘膜下異所腺。消化管症候群（上巻），496-499, 2001
- 4) 安武晃一：胃異所性 Brunner 腺腫。消化管症候群（上巻），334-336, 2001
- 5) 松丸一彦 他：胃 adenomyoma。消化管症候群（上巻），290-292, 2001