

## 胃良性奇形腫の1例

|       |   |
|-------|---|
| メタデータ | 言語: jpn<br>出版者:<br>公開日: 2017-10-04<br>キーワード (Ja):<br>キーワード (En):<br>作成者:<br>メールアドレス:<br>所属: |
| URL   | <a href="http://hdl.handle.net/2297/8739">http://hdl.handle.net/2297/8739</a>               |

## 胃良性奇形腫の1例

金沢大学医学部病理学第一講座

中西 功 夫

金沢大学医学部附属病院中央検査部

松 原 藤 継

金沢大学医学部外科学第二講座

素 谷 宏

金沢大学医学部小児科学講座

小 泉 晶 一

(昭和53年9月25日受付)

本論文の要旨は第5回日本小児外科学会北陸地方会に発表した。

胃に発生する奇形腫は稀な腫瘍で、1922年 Eustermanら<sup>1)</sup>によって初めて2例の報告がなされて以来今日まで55例を数えるに過ぎない。近年、小児外科の発達に伴ってその診断や手術治療が比較的容易に行なわれ、良好な治癒率が得られている。しかし、胃の奇形腫は発生頻度が低く、これまでの報告例はすべて男性患者であり、又悪性転化が認められない点等、特異な位置を占める奇形腫であると考えられる。

著者らは生後40日目の男児の良性胃奇形腫を経験したのでその所見を報告し、性染色体(Barr body)の出現率について他の奇形腫と比較検討し、文献的考察を合せて、本腫瘍の組織発生について若干の考察を加える。

### 症 例

生後40日目の男児、両親は健康で同胞1人、患児は2男であるが、家族歴に特記すべきことはない。生後間もなく頻回の発熱があり某医を訪れ、腹部腫瘍を指摘されて金沢大学医学部附属病院小児科を受診した。初診時体重4420g、体温38.7°C、混合栄養状態で脈拍正常、左上腹部に巨大な腫瘍を触れる以外に病的所見はみとめられなかった(図1)。嘔吐は生後1回のみで、痙攣、チアノーゼ等は認めなかった。レ線所見：CTR、

0.49、心肺に異常はなかった。腹部では、左上腹部を占居する粗大結節状の腫瘍が認められ、処々に石灰の沈着がみられた。注腸造影で横行結腸が腫瘍によって前下方に圧迫されていることが示され、IVPでは左腎杯の形態に異常はなかった。検査成績ではVMP陰性で、白血球増多を認める以外に異常所見はなかった。4病日目に後腹膜腫瘍の診断のもとに手術の目的で第2外科に転科した。

外科転科第2病日に臍上部横切開で開腹手術が行なわれた。腫瘍は胃体部小彎壁から発生し胃外及び胃内にまたがって発育しており、多房性並びに結節性、暗

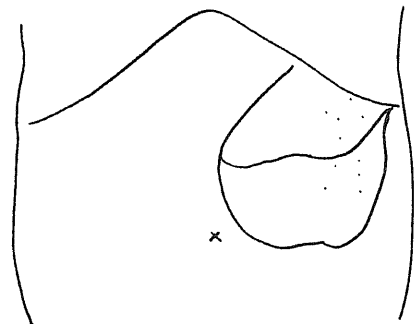


図1 左上腹部を占める石灰化腫瘍結節

A case of gastric teratoma. Isao Nakanishi ; Department of Pathology, Fujitsugu Matsubara ; Central Laboratory of Kanazawa University Hospital, Hiroshi Sodani ; Department of Surgery, Shoichi Koizumi ; Department of Pediatrics.

赤灰白黄色の外観を呈していた(図2)。腫瘍の一部は肝、横隔膜と軽度に線維性癒着を営んでいた。術中迅速標本によって、三胚葉性の成熟組織から成る良性奇形腫と診断された。腫瘍を含む胃部分切除術、ビルロートI法で再建後、局所にフィルムドレインを挿入して手術は終わった。術後30mlの輸血を1回必要としたが経過は順調で術後18病日にはフィルムドレインを抜き、40病日目に退院した。

病理学的所見：手術によって剔出された材料は腫瘍を含む胃部分切除標本(胃小彎線長10.5cm、十二指腸1.0cm、S75-2142)で、固定後腫瘍重量は250g、大きさ9.5×9.5×10.0cmであった。腫瘍は胃体部小彎に位置し胃内外にまたがって結節状の突出を示し各々7.5×5.5×4.5cm、9.5×9.5×5.5cmであった。腫瘍外表の結節性突出部の一部には大小の嚢胞が

透見された(図3)。剖面では多数の粘液性の液体を容れた嚢胞がありその間に黒色線状病巣、灰白黄色充実性及び半透明の軟骨組織が不規則にいみだれて認められた(写真1)。毛髪、脊椎や四肢類似構造は見出されなかった。組織学的には嚢胞の性状は様々で、内壁は重層扁平上皮、杯細胞を含む円柱上皮、中皮細胞、又は線毛上皮で被われているものが区別された。充実性腫瘍部分には未熟な腎組織(写真2)、未熟な中枢神経並びに色素細胞を混えた脈絡膜(写真3)、脈絡叢、軟骨、軟骨化骨、唾液腺、皮膚付属腺、末梢神経束、神経節、胃底腺壁細胞を含む胃粘膜(写真4)、平滑筋束、腸粘膜組織、気管及び気管支構造、未熟な肺組織(写真5)等胎生期の未熟な組織が混在してみとめられた。生殖器構造、四肢又は脊椎構造はみとめられなかった。腫瘍に接する胃固有粘膜は消失し、フィブリンと軽度の細胞浸潤を伴う肉芽組織が露出していた(写真6)。

考 察

胃奇形腫は一般的に1922年Eustermanら<sup>1)</sup>が27例の良性胃腫瘍を検索した中に2例(31才と8才男子)のデルモイドを記載したことに始まると言われて

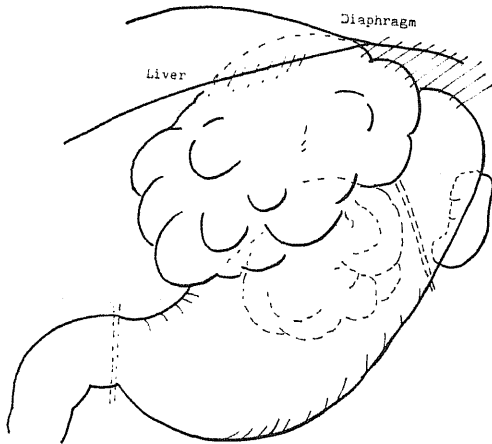


図2 胃腫瘍の手術所見

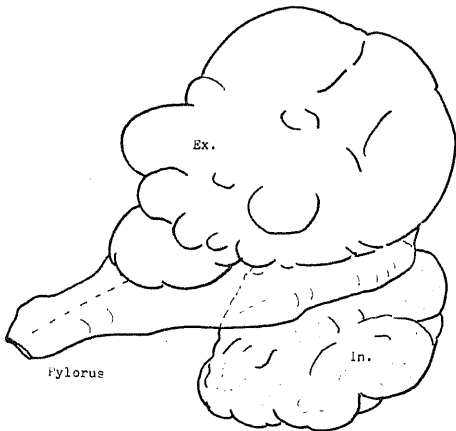


図3 胃体部小彎から発生し胃外、内発育を示す多房性結節性腫瘍

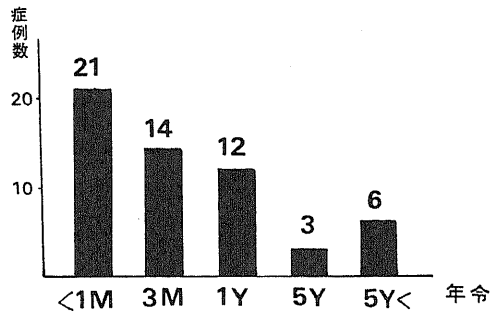


図4 胃奇形腫の年齢分布

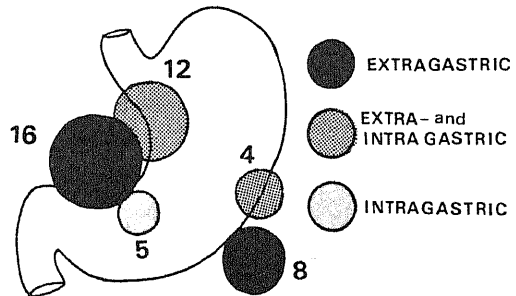


図5 胃奇形腫の発生部位並びに発育様式の頻度

いる。しかし、彼等は組織学的に十分な検査を行わず、この腫瘍をデルモイドと報告したに過ぎなかった。

1936年 Polony<sup>2)</sup>が6才男児胃前壁に主に胃外発育した腫瘍が組織学的に三胚葉性の構造をとっていることを確認し、これを胃奇形腫 (Teratome exogastrigue) と名づけたことによってその存在が広く知られるようになったものである。以後今日まで外国例で44例、本邦で本例を含め12例の報告があり、最近では文献的考察を加えた発表<sup>3)~5)</sup>がなされている。

胃奇形腫の年齢分布は、約84%は1才未満の乳児に発生し(図4)、発生部位は胃後壁小彎に多発し主に胃外発育傾向を示すことが知られている(図5)。注目されるのは今日までの症例が全て男児であるということである。又、従来の報告例でも本例でも遺伝的背景は全く認められていない。胃の奇形腫が男性に限られていることは尾仙骨部奇形腫が女児に多い<sup>6)7)</sup>と言う事実と対照的である。

胃奇形腫における腫瘍細胞の核型についてはこれまで2例<sup>8)9)</sup>の成績が報告されているが、いずれも男性核型を示している。本例においても扁平上皮細胞、線維芽細胞及び軟骨細胞について Barr body を目安に核型を調べてみると、Barr body はほとんど認められ

表1 胃奇形腫腫瘍細胞の Barr body 出現頻度

|        |       |
|--------|-------|
| 扁平上皮細胞 | 2/100 |
| 軟骨細胞   | 1/100 |
| 線維芽細胞  | 0/100 |

表2 卵巢奇形腫扁平上皮細胞の Barr body 出現頻度

| 症 例     | 年 令 |        |
|---------|-----|--------|
| 2152-77 | 45才 | 76/100 |
| 448-76  | 28  | 83/100 |
| 3283-76 | 48  | 65/100 |
| 4218-76 | 26  | 57/100 |
| 4593-76 | 19  | 81/100 |
| 3314-75 | 25  | 67/100 |
| 2724-75 | 55  | 70/100 |
| 1386-72 | 27  | 70/100 |
| 2157-77 | 30  | 80/100 |
| 3527-77 | 22  | 70/100 |

(金沢大学医学部第1病理学教室症例)

ず全て男性核型であった(表1, 写真7)。奇形腫は一般に gonadal と extragonadal origin に分類されているが<sup>10)</sup>、いずれの場合も染色体の検索からこれらの奇形腫は必ずしも宿主の核型を有しないことが知られている<sup>11)</sup>。特に睾丸奇形腫の約1/3は女性核型をもつことからこの腫瘍の母細胞は娘細胞同志の autofertilization の形をとるものと推定されている<sup>10)11)</sup>。そこで著者らも卵巢奇形腫(10例)、睾丸の良性(5例)、悪性奇形腫(5例)について性染色体を検索した所、卵巢腫瘍では全て女性型、睾丸腫瘍では1/5例に10%以上の Barr body を認めた(表2, 3, 写真8, 9)。この成績は gonadal origin の腫瘍細胞の異常な細胞増殖様式、特に autofertilization

表3 良性、悪性睾丸奇形腫扁平上皮細胞の Barr body の出現頻度

|                        |     |        |
|------------------------|-----|--------|
| 症 例                    | 年 令 |        |
| 77-196 (良性)            | 1才  | 4/100  |
| 73-1492 (悪性)           | 19  | 11/100 |
| 70-26 (悪性)             | 22  | 3/100  |
| 68-908 (悪性)            | 36  | 13/100 |
| 68-1327 (良性)           | 1   | 6/100  |
| 65-1377 (悪性)           | 30  | 4/100  |
| (以上、金沢大学付属病院中央検査部病理症例) |     |        |
| 1001-74 (良性)           | 4才  | 3/100  |
| 3342-71 (悪性)           | 19  | 5/100  |
| 1185-66 (良性)           | 27  | 3/100  |
| 1674-66 (良性)           | 10  | 1/100  |
| (以上、金沢大学医学部第1病理学教室症例)  |     |        |

表4 良性縦隔奇形腫扁平上皮細胞の Barr body 出現頻度

| 症 例     | 年 令 | 性 |        |
|---------|-----|---|--------|
| 77-3995 | 4カ月 | 男 | 8/100  |
| 75-333  | 23才 | 男 | 4/100  |
| 72-1846 | 11  | 男 | 4/100  |
| 77-2503 | 31  | 女 | 43/100 |
| 76-3758 | 21  | 女 | 47/100 |
| 76-2860 | 28  | 女 | 56/100 |
| 75-3391 | 32  | 女 | 30/100 |

(金沢大学付属病院中央検査部病理症例)

の可能性を示唆している。一方, extragonadal origin の奇形腫では一般に宿主の核型をとる傾向にあり, 数例の男性縦隔腫瘍において女性核型をもつものが知られている程度に過ぎない<sup>11)12)</sup>。著者らは本例及び7例の縦隔奇形腫の核型を調べたところ全て宿主と同一の核型を示した(表4, 写真10)。さらに extragonadal origin の奇形腫は理論的には不完全な結合双生児(incomplete conjoined twin)であって体正中線上に生ずる頭頸部, 縦隔, 腹部及び尾仙骨部の奇形腫はこれに属すると考えられている<sup>10)</sup>。

胃の奇形腫もこの範疇に含まれると思われるが, 胃の奇形腫は男性に限られている。このことは頭頸部や縦隔奇形腫には男女差はほとんどないこと<sup>6)7)13)</sup>を考慮に入れると部位特異性を考えざるを得ない。

組織学的には胃の奇形腫は成熟及び未熟の三胚葉性組織から成っており, 分化度はかなり高いものと考えられる。脊椎や四肢構造が認められる奇形腫に対しては一般に fetus in fetu とする名称が用いられているが<sup>14)</sup>, 本例には同上構造物はみとめられなかった。しかし, 胃奇形腫報告例の中には明らかな fetus in fetu が2例<sup>15)16)</sup>認められ, さらに女性生殖器を確認した他の3例<sup>17)18)19)</sup>が見出される。従って, 胃奇形腫はもともと incomplete conjoined twin であって, その分化程度が尾仙骨奇形腫と, 後腹膜から腹腔内へ発育する fetus in fetu<sup>14)</sup>との中間的な位置にある奇形腫として理解すべきなのであろう。このような考え方は胃の悪性奇形腫が皆無であることをよく説明しようと思われる。

診断学的には本例のように後腹膜腫瘍との鑑別が難かしい場合もあるが, 腫瘍の位置, 石灰沈着像, VMA 陰性, IVP による腎との関係に注意すべきである。本腫瘍は手術的に完治するので小児外科の進歩に伴ってその治癒率は向上して来ている。本例を含め, 1965年以降の手術報告例29例中27例は予後良好であった。不幸な転帰をとった2例のうち1例<sup>19)</sup>は術前から poor risk の5ヶ月男児で腫瘍は1400gと巨大で噴門に位置していた関係上術後7日目に嚥下性肺炎を併発して死亡, 他の1例<sup>9)</sup>は2ヶ月男児, 胃体部に発生した500g奇形腫で術中不注意から術後汎腹膜炎を発生, 再開腹術, 化学療法に拘らず術後8日目に死亡していた。

## 結 語

40日目の男児, 胃体部小彎に発生し胃内外へ発育した良性胃奇形腫の手術治験例を報告した。本例の性染色体の検索, 他の奇形腫の Barr body の出現率を合せ

て調べ, 文献的考察を加えて胃奇形腫の組織発生について考察した。胃奇形腫はその分化程度からみて一般の奇形腫よりはむしろ fetus in fetu に近い成熟した奇形腫であろうと考えられた。

## 文 献

- 1) Eusterman, G. B. & Sentry, E. G. : Surg. Gynec. & Obst., 34, 5 (1922).
- 2) Polony, M. : Mem. Acad. Chir., 62, 622 (1936).
- 3) Morrison, L., Snodgrass, P. & Wiselan, H. : Clin. Pediatr., 14, 712 (1975).
- 4) Hollwarth, M. & Hasebach, H. : Z. Kinderchirurg., 15, 155 (1974).
- 5) Moriuchi, A., Nakayama, I., Muta, H., Taira, Y., Takahara, O. & Yokoyama, S. : Acta Path. Jap., 27, 749 (1977).
- 6) Berry, C. L., Keeling, J. & Hilton, C. : J. Path., 98, 241 (1969).
- 7) 池田恵一・小副川武 : 治療, 50, 1657 (1968).
- 8) Gray, S. W., Johnson, H. C. Jr. & Skandalakis, J. E. : Southern Med. J., 57, 1346 (1964).
- 9) 渡辺 至・大友真孝・種市 襄・鈴木宏志・葛西森夫・工藤正文・吉村洋三 : 小児外科-内科, 7, 1225 (1975).
- 10) Ashley, D. J. B. : Cancer, 32, 390 (1973).
- 11) Theiss, E. A., Ashley, D. J. B. & Mostofi, F. K. : Cancer, 13, 323 (1960).
- 12) Myers, L. M. : J. Path. Bact., 78, 43 (1959).
- 13) Hosseim Mahour, G., Woolley, M. M., Trivedi, S. N. & Landing, B. H. : Surgery, 76, 309 (1974).
- 14) Lord, J. M. : J. Path. Bact., 72, 627 (1956).
- 15) 藤井慎一郎・三村 久 : 日臨外, 9, 25 (1957).
- 16) Lee, T. C. & Bachhuber, D. H. : Georgetown Med. Bull., 15, 230 (1962).
- 17) Meadow, S. R. : Postgrad. Med. J., 44, 183 (1968).
- 18) DeAngelis, V. R. : Surgery, 66, 794 (1969).
- 19) Nandy, A. K., Sengupta, P., Chatterjee, S. K. & Sarkar, S. K. : J. Pediatr. Surg., 9, 563 (1974).

## 写 真 説 明

写真1 : 小彎線で縦断された腫瘍の剖面, 多房性構

- 造をとり灰白黄色の充実性の部分と黒色線状病巣がこれらの間を埋めている。
- 写真2：未熟な糸球体及び細尿管構造 × 150
- 写真3：上方にメラニン色素を含む脈絡膜,下方には神経管に類する神経原基構造 × 150
- 写真4：胃粘膜上皮及び壁細胞(矢印) × 300
- 写真5：未発達肺の肺組織,未だ肺泡は形成されていない。 × 50
- 写真6：腫瘍の胃内腔面(矢印),フィブリン及び少しの肉芽組織で被われた腫瘍組織が露出している。 × 50

- 写真7：胃奇形腫扁平上皮細胞,稀に Barr body が認められる(矢印)。 × 1200
- 写真8：卵巣奇形腫の扁平上皮細胞,多くの細胞核に sex chromatin がみとめられる(矢印)。 × 1200
- 写真9：睪丸悪性奇形腫の扁平上皮細胞, Barr bodies 陽性を示す部分(矢印は Barr bodies)。 × 1200
- 写真10：女性の縦隔奇形腫の扁平上皮細胞,宿主と同じ核型を示し Barr bodies はかなり多くみとめられる(矢印)。 × 1200

### A b s t r a c t

A case of benign gastric teratoma in a 40-day-old male infant was reported. The tumor originated in the wall of the body of the stomach at the lesser curvature with both exogastric and endogastric growth weighing 250 gms and measuring  $9.5 \times 9.5 \times 10.0$  cm in fixed state. A cut surface of the tumor revealed the various appearance of multiple cysts, linear black structures and grayish white nodular foci. Microscopically, there were well differentiated tissues and immature organs derived from three germ layers with an intermingled anlage of the central nervous system. No gonadal tissues, remnant limbs or vertebral structures were found. Barr bodies of this tumor cells examined in the squamous cells, chondrocytes and fibroblasts were negative. On the basis of analysis on other tumors such as ovarian, testicular and mediastinal teratomas and reviewing the literatures, histogenesis of the gastric teratoma was discussed, suggesting that the gastric teratoma would be incomplete conjoined twin similar to the fetus in fetu in origin although male preponderance was not well understood.

