

لیومیوماتوزیس مری در مرد ۷۰ ساله: گزارشی موردی

چکیده

عباس عبدالهی^۱، رضا باقری^۲، قدرت
... مداح^۳، محمد تقی رجبی مشهدی^۴

۱- گروه جراحی عمومی

۲- گروه جراحی توراکیس و عضو مرکز تحقیقات
سرطان

۳- گروه جراحی عمومی و عضو مرکز تحقیقات
سرطان

۴- گروه جراحی عمومی و عضو مرکز تحقیقات
سرطان

دانشگاه علوم پزشکی مشهد

* نویسنده مسئول: مشهد، دانشگاه علوم پزشکی مشهد،
بیمارستان قائم (عج)، دفتر گروه جراحی قلب و توراکیس
تلفن: ۰۵۱۱-۸۰۱۲۸۴۰

email: BagheriR@mums.ac.ir

مقدمه

تومورهای استرومایی دستگاه گوارش Gastrointestinal Stromal Tumors (GIST) طیف وسیعی از تومورهای استرومایی را شامل می‌گردد که ندرتاً در مری دیده می‌شود. شایع‌ترین تومور از این دسته در مری لیومیوم (Leiomyoma) می‌باشد. لیومیوماتوزیس نیز جزو این طیف از تومورهای مری است که شیوع اندکی داشته و منجر به بروز عوارض در بیمار می‌گردد. شیوع لیومیوم در مردان نسبت به زنان دو برابر بیشتر است. به علت منشأ این تومورها که از عضلات صاف می‌باشد بیشتر از ۹۰٪ موارد تومور محدود به ۲/۳ تحتانی مری است.^۱ لیومیوم معمولاً منفرد است اما گاهی به صورت متعدد و منتشر در طول مری دیده می‌شود. این تومورها محدود به لایه عضلانی بوده و اغلب تهاجم به مخاط یا نسوج اطراف ندارند.^۲

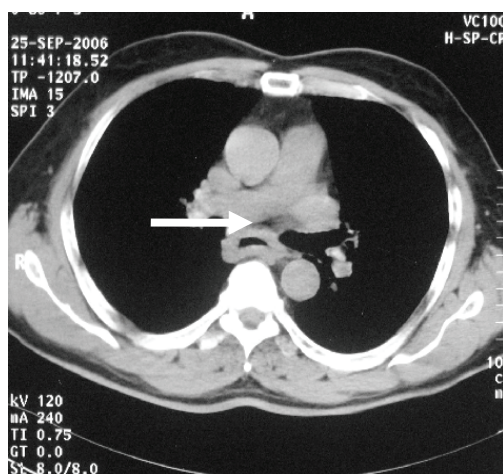
معرفی بیمار

بیمار آقای ۷۰ ساله است که به علت اختلال در بلع و دیسفاژی،

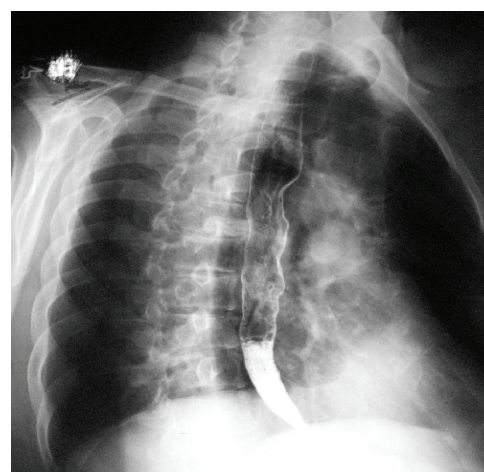
زمینه و هدف: تومورهای استرومال دستگاه گوارش نادر و از سلول‌های عضلانی منشأ گرفته، منشأ مزانشیمال داشته و تحت عنوان کلی تومورهای استرومایی دستگاه گوارش Gastrointestinal stromal tumors نام‌گذاری شده‌اند. هدف از این مطالعه معرفی یک بیمار با لیومیوماتوزیس مری است که با ازوفازکتومی درمان گردید. **معرفی بیمار:** مردی ۷۰ ساله به علت اختلال در بلع، دیسفاژی، آروغ زدن و حالت تهوع بعد از غذا مراجعه کرد. در بررسی‌های به عمل آمده، در بلع باریوم به جز اتساع مری و حالت انبساطی (تجمع مواد غذایی و بزاق) در مری نکته خاص دیگری نداشته و در سی‌تی‌اسکن اتساع مری توراکیک به طول ۱۰ سانتی‌متر مشهود بود. آندوسکوپی دستگاه گوارش فوقانی نرمال بوده است. بیمار تحت ترانس ازوفازیتال اولتراسوند قرار گرفت که در فاصله ۲۰ تا ۳۰ سانتی‌متری از دندان پیشین افزایش ضخامت جداره عضلانی مری مشهود بود. با تشخیص تومور استرومایی دستگاه گوارش جهت جراح ارجاع گردید و تحت عمل جراحی ترانس هیاتال ازوفازکتومی قرار گرفت و با حال عمومی خوب از بیمارستان مرخص شد و تاکنون (یک‌سال بعد از عمل) مشکلی نداشته است.

کلمات کلیدی: تومورهای استرومایی، دستگاه گوارش، مری

آروغ زدن و حالت تهوع بعد از صرف غذا مراجعه کرده بود، نامبرده کاهش وزن نیز داشته است. بیمار سابقه‌ای از گیرکردن غذا یا استفراغ را نمی‌دهد. در بررسی‌های به عمل آمده در بلع باریوم به جز اتساع مری و حالت انبساطی در مری که شامل مواد غذایی و بزاق بود یافته دیگری پیدا نشد و مخاط مری به نظر نرمال بود و دیستال مری تنگی واضحی نداشت. در سی‌تی‌اسکن توراکیس، مری توراکیک به طول ۱۰ سانتی‌متر اتساع داشت و جدار مری ضخیم‌تر از حد معمول دیده شد، لنفادنوپاتی توراکیک نداشت. بیمار تحت آندوسکوپی فوقانی GI قرار گرفت که گزارش آن نیز شامل استاز محتویات غذایی در مری بدون تنگی واضح دیستال و مخاط مری نیز نرمال گزارش شده است. بیمار از نظر GERD (رفلاکس معدی- مروی) نیز بررسی شد، PH مری ۲۴ ساعته نرمال گزارش شد و مانومتري مری نیز انجام شد که تنه مری نرمال بود و تنها مختصری اختلال حرکتی دیستال مری گزارش شد. اولتراسونوگرافی آندوسکپی نیز انجام شد که در فاصله ۲۰ تا ۳۰



شکل - ۲: در سی تی اسکن بیمار ضخامت جداره مری مشهود است.



شکل - ۱: رادیوگرافی بلع باریوم بیمار

از تومور نیز نادر است بیمار ما نیز هماتمز نداشت. در صورتی که خونریزی به صورت ملنا رخ دهد باید به فکر سایر تشخیص‌ها باشیم هر چند در گزارش‌های Gaiarugi و همکاران یک مورد خونریزی به صورت هماتمز شدید که نیاز به جراحی اورژانس پیدا کرد در کودک ۱۴ ساله گزارش شد و تومور در محل دئودنوم بود اما آندوسکوپی منفی بوده است.^۲ در یک گزارش از Wiener و همکاران که ۲۴ بیمار با تومور استرومایی GI گزارش شده‌اند ۶۵٪ بیماران با خونریزی از دستگاه گوارش مراجعه نموده بودند. هر چند در این گروه از بیماران ۱۵ مورد در معده و تنها یک مورد در مری بوده است.^۳ با توجه به اینکه تومور به داخل لومن گسترش نمی‌یابد لذا علائمی همچون دیسفاژی و درد رترواسترنال در مواردی که تومور کوچک باشد رخ نمی‌دهد و تنها در مواردی که اندازه تومور بالای پنج سانتی‌متر باشد ممکن است علائم فوق دیده شود و خیلی اوقات تومور در اتوپسی پیدا شده و بیمار در طول زندگی بدون علامت بوده است.^۳ گاهی تومور به طور اتفاقی در رادیوگرافی قفسه (صدری) به صورت توده رترواسترنال ظاهر می‌نماید و یا بیمار به علت درد اپیگاستر آندوسکوپی شده) و توده‌ای در مری بدون ارتباط با علائم بیمار مشاهده می‌گردد.^۳ در آندوسکوپی توده‌ای زیر مخاطی دیده می‌شود که نباید از آن نمونه‌گیری انجام شود چرا که عمل بعدی بیمار به علت چسبندگی ایجاد شده مشکل‌تر می‌گردد.^۳ در رادیوگرافی بلع باریوم توده‌ای با حدود مشخص و واضح سطحی و صاف دیده می‌شود. توده فقط یک طرف مری را درگیر نموده و به صورت

سانتی‌متر از دندان پیشین افزایش ضخامت جداره مری گزارش شد، این افزایش ضخامت منتشر بوده و محدود به قسمت خاصی از مری نبوده است. توده یا لنفادنوپاتی نیز گزارش نشد. با توجه به یافته‌های فوق برای بیمار GIST مطرح شد که نامبرده کاندید عمل جراحی گردید. بیمار تحت ازوفازکتومی ترانس هیاتال قرار گرفت و مری بسیار متسع دیده شد که تا حد مری توراسیک نیز افزایش ضخامت ادامه داشت. مری حذف گردید و معده جایگزین آن گردید. بیمار با حال عمومی خوب از بخش مرخص شد. جواب آسیب شناسی نامبرده لیومیوماتوزیس مری بود.

بحث

GIST (تومورهای استرومای دستگاه گوارش) بسیار ناشایع‌اند و در عین حال لیومیوما بیشتر از ۵۰٪ تومورهای خوش‌خیم را شامل می‌گردد. سن متوسط بیماران ۳۸ سال گزارش شد. که بر خلاف موارد کانسر مری می‌باشد که در آنجا سن بیماران اغلب بالاتر است. این تومور از عضلات صاف منشأ گرفته و در ۶۶٪ موارد در دیستال مری دیده می‌شود. تومور اغلب منفرد است اما گاهی اوقات منتشر و متعدد می‌باشد که در موارد منتشر لیومیوماتوزیس مری اطلاق می‌شود.^۱ اندازه این تومورها اغلب متغیر و شکل تپیک آن بیضوی است. تومور در طی رشد به اطراف تهاجم پیدا نمی‌کند و حتی به مخاط مری نیز دست‌اندازی نکرده و مخاط همیشه سالم است. (یک علامت مهم در تشخیص کانسر و تومور خوش‌خیم مری).^۲ خونریزی

آنان بسیار اندک است و فرم بدخیم آن به نام لیومیوسارکوما بسیار نادر است. در نتیجه پی‌گیری این بیماران هم مورد بحث است.^{۴۸} در مواردی که رزکسیون تومور اندیکاسیون داشته باشد در تومورهای ۰/۳۳ میانی مری توراوتومی راست انتخابی است و در مواردی که تومور محدود به ۰/۳۳ تحتانی باشد توراوتومی چپ مناسب خواهد بود. درمان انتخابی هر لیومیومای منفرد، خارج‌سازی آن enucleation می‌باشد ولی در مواردی که مری به‌صورت منتشر درگیر باشد (لیومیوماتوزیس) یا در مواردی که لیومیومای بزرگ داشته باشیم که کاردیا را نیز درگیر کرده باشد رزکسیون مری بایستی انجام شود هر چند در مواردی که لیومیومای متعدد داشته باشیم، امکان انوکلیشن متعدد لیومیوما گزارش شده است.^{۴۹} اکثر مطالعات ریسک بدخیمی بالاتر و عدم توانایی در تفکیک لیومیوماتوزیس مری از فرم‌های بدخیم رزکسیون جراحی مری را در لیومیوماتوزیس مری توصیه می‌کنند.^{۱۰} گزارشات متعددی از جمله Tay و همکاران و seremetis و همکاران در مورد Thoracoscopic enucleation و ازوفازکتومی توراوسکوپیک در درمان لیومیوما و لیومیوماتوزیس مری ارائه شده است.^{۵۱} درمان جراحی این تومورها معادل درمان قطعی (cure) بوده و بیماران نیازی به لنفادنکتومی وسیع منطقه‌ای نداشته‌اند زیرا تومور تهاجم لنفاتیک ندارد. رادیوتراپی و کموتراپی در این بیماران غیر مؤثر است.^{۵۱} GIST مری بسیار ناشایع است و به‌دلیل اینکه تنها روش تشخیصی قطعی در بیمار اکسیزیون ضایعه است و اینکه در بعضی فرم‌های خوش‌خیم آن (لیومیوماتوزیس) ریسک بدخیمی وجود دارد جراحی بهترین راه درمانی ضایعه است با این حال به علت شیوع کم ضایعه نیاز به بررسی‌های وسیع‌تر در آینده را می‌طلبد.

دایره‌ای و محیط مری را در بر نمی‌گیرد مگر در مواردی که تومور از نوع لیومیوماتوزیس باشد که تمام دور تا دور مری بافت تومورال خواهد بود و مری به‌صورت دایره‌ای درگیر است.^۴ بیماری که ما معرفی کردیم نیز از نوع لیومیومای منتشر است که در رادیوگرافی بلع باریوم اتساع مری بدون توده‌ای مشخص و با سطح مخاطی سالم دیده شد. در آندوسکوپی نیز مخاط در سراسر مری سالم بود و تنها مختصری استاز در مری و تجمع مواد غذایی و بزاق به علت اختلال حرکتی یا تنگی محل لیومیوم دیده شد و توده واضحی یافت نشد. در EUS آندوسکوپیک اولتراسونوگرافی (EUS) توده‌های هیپاکو که محدود به زیر مخاط و بافت عضلانی است دیده می‌شود.^۴ در بیمار معرفی شده نیز EUS انجام شد و به‌علت لیومیومای منتشر افزایش ضخامت جدار مری در ۰/۶۶ تحتانی بدون وجود توده‌ای واضح گزارش گردید. در مطالعات اخیر استفاده از بررسی‌های کلینیکو پاتولوژیک و ایمونوهیستوشیمی برای تشخیص تومورهای استرومایی گزارش شده است. در یک مطالعه توسط Alvarado که در ۲۷۵ بیمار با تومور استرومایی دستگاه گوارش انجام شده است در ۲۵۵ بیمار (۹۲٪) بررسی با CD 117 مثبت بود. تست ایمونوهیستوشیمی CD 34 نیز در ۸۲ بیمار (۳۲٪) مثبت گزارش شد و در ۱۳ بیمار (۴/۷٪) برای desmin تست مثبت داشته‌اند.^۵ همین گزارش از Miertino و همکاران و Surgor و همکاران با آمار مشابه نیز دیده می‌شود.^{۶،۷} اکسیزیون لیومیومای علامت‌دار یا در مواردی که بالاتر از پنج سانتی‌متر باشد توصیه می‌گردد. در موارد بدون علامت یا مواردی که به‌طور اتفاقی کشف می‌گردد پی‌گیری بیمار و تحت نظر گرفتن کفایت می‌کند. این تومورها از رشد کندی برخوردار بوده و شانس دژنراسیون بدخیمی

References

1. Brunnicardi FC, Anderson DK. Schwartz's principles of surgery, 8th ed. New York: McGraw-Hill: 2005.
2. Chiarugi M, Galatioto C, Lippolis P, Zocco G, Seccia M. Gastrointestinal stromal tumour of the duodenum in childhood: a rare case report. *BMC Cancer* 2007; 7: 79.
3. Wiener Y, Gold R, Zehavy S, Sandbank J, Halevy A. Primary gastrointestinal stromal tumors. *Harefuah* 200; 140: 377-80.
4. Jozeph B, Zwischenberger MD, Clare S, Manoos S. Esophagus. In: Townsend CW, editors. Sabiston Textbook of Surgery. 7th ed. Philadelphia: WB Saunders; 2005. p. 1116-7.
5. Alvarado C, Vazguary G, Sierra S. Clinicopathologic study of 275 cases of gastrointestinal stromal tumors. *Am J Surg Pathol* 2007; 11: 39-45.
6. Miettinen M, Lasota J. Gastrointestinal stromal tumors: definition, clinical, histological, immunohistochemical, and molecular genetic features and differential diagnosis. *Virchows Arch* 2001; 438: 1-12.
7. Sugár I, Forgács B, István G, Bognár G, Sápy Z, Ondrejka P. Gastrointestinal stromal tumors (GIST). *Hepatogastroenterology* 2005; 52: 409-13.
8. Tay YC, Ng CT, Lomanto D, Ti TK. Leiomyoma of the oesophagus managed by thoracoscopic enucleation. *Singapore Med J* 2006; 47: 901-3.
9. Logroño R, Jones DV, Faruqi S, Bhutani MS. Recent advances in cell biology, diagnosis, and therapy of gastrointestinal stromal tumor (GIST). *Cancer Biol Ther* 2004; 3: 251-8.
10. Seremetis MG, Lyons WS, deGuzman VC, Peabody JW Jr. Leiomyomata of the esophagus. An analysis of 838 cases. *Cancer* 1976; 38: 2166-77.
11. DeMatteo RP, Lewis JJ, Leung D, Mudan SS, Woodruff JM, Brennan MF. Two hundred gastrointestinal stromal tumors: recurrence patterns and prognostic factors for survival. *Ann Surg* 2000; 231: 51-8.

Esophageal leiomyomatosis in a 70-year-old man: a case report

Abdollahi A.¹
Bagheri R.*²
Maddah Gh.³
Rajabi Mashhadi M.T.⁴

1-Department of General Surgery
2- Department of Thoracic Surgery,
Member of Cancer Research Center
3- Department of General Surgery,
Member of Cancer Research Center
4- Department of General Surgery,
Mashhad University of Medical
Sciences

Abstract

Background: Stromal tumors of the gastrointestinal tract (GISTs) are uncommon and the cell of origin is actually mesenchymal. Stemming from smooth muscle, 90% of GISTs, or leiomyomas, are found in the lower two thirds of the esophagus. Typically solitary, multiple tumors (leiomyomatosis) are occasionally reported. Remaining intramural during their growth, most of their bulk protrudes toward the esophageal outer wall, with a freely-movable, normal-looking overlying mucosa. In this study, we report a rare case of esophageal leiomyomatosis treated by esophagectomy.

Case Report: A 70-year-old man presented with discomfort upon swallowing, dysphagia, nausea, belching and weight loss. After a barium swallow, only dilatation of the esophagus from the retained food and saliva was seen. CT scan revealed a 10-cm dilatation of the thoracic esophagus. An endoscopy and upper GI series was performed, but no pathology was found. Esophageal manometry and pH monitoring for gastroesophageal reflux were normal. Upon endoscopic ultrasonography, a thickening of the esophageal wall was identified 20-30 cm from the dental arch. The patient was diagnosed with a GIST, referred to surgeon and a transhiatal esophagectomy was performed. The patient was discharged from the hospital in good condition and has had no problem during the one-year period of follow up.

Keywords: Stromal tumors, gastrointestinal, esophagus.

* Corresponding author: Ghaem Hospital,
Mashhad University of medical sciences
Tel: +98-0511-8012840
email: BagheriR@mums.ac.ir