

## 線毛円柱上皮よりなる消化管重複症の2例

磐田市立総合病院外科, 名古屋大学第1外科\*

上松 俊夫 北村 宏 岩瀬 正紀  
小栗 孟 津崎 修 二村 雄次\*

線毛円柱上皮よりなる消化管重複症の2例を経験したので報告する。症例1は14歳の男性で無症状。腹部 computed tomography にて偶然発見された。重複胃は胃体上部後壁に強固に結合、一部筋層を共有していた。大きさは7×4×4cm。病理組織検査で、重複胃は多列線毛円柱上皮で覆われ、3層の比較的厚い筋層を有した。症例2は15歳男性で主訴は腹痛と嘔吐。イレウスにて手術。重複腸管は回腸にあり、大きさは10×6.5×6.5cmで、回腸の軸捻転を伴っていた。重複腸管は内面を多列線毛円柱上皮で覆われ、厚い筋層を回腸と共有していた。消化管重複症は種々の発生学的異常に起因するため、組織学的にも解剖学的にも多彩である。自験例は食道重複症でしばしばみられるように線毛円柱上皮で覆われており、その解剖学的、病理組織学的特徴から、胎生期の前腸に由来する消化管重複症と考えられた。

**Key words:** duplication of the alimentary tract, ciliated columnar epithelium, foregut

### はじめに

消化管重複症は、従来 enteric cyst, enterogenous cyst, giant diverticula, ileum duplex, inclusion cyst などと呼ばれていた疾患に対し1940年 Ladd & Gross<sup>1)</sup>によって提唱された総称名で、舌根から肛門に至るいずれの部位にも発生する。しかし消化管重複症が形態学的にも組織学的にも多彩なため Gross の定義が厳密に適合しにくい場合もあり、消化管嚢腫として報告されている場合もある。我々は、内面をすべて多列線毛円柱上皮で覆われたいわゆる前腸嚢胞 (foregut cyst)<sup>2)</sup>と考えられる胃重複症と回腸重複症の2例を経験したので報告する。

### 症 例

症例1: 14歳, 男性。

主訴: なし。

家族歴, 既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 昭和61年5月6日に右側腹部を蹴られ、同部の鈍痛を訴えて5月12日精査目的で当院を受診した。腹部 computed tomography (以下 CT) で異常を指摘され入院となった。

入院時現症: 眼瞼結膜に貧血なし。眼球結膜に黄疸なし。腹部は平坦、軟で腫瘤は触知しなかった。

入院時検査成績: 血液, 尿, 生化学検査でも異常を認めなかった。

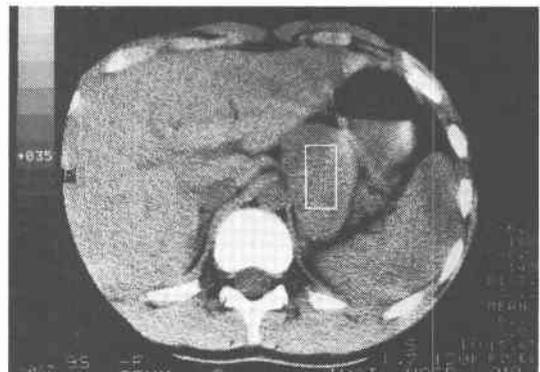
CT 所見: 網嚢内に胃体後壁に接する卵円形の嚢胞を認めた (Fig. 1)。

腹部超音波検査所見: 嚢胞の内部エコーは均一で、その壁は平滑である (Fig. 2)。

胃透視所見: 胃体部後壁に壁外性の圧排像を認めた。

内視鏡的逆行性膵胆管造影所見: 異常を認めなかった。

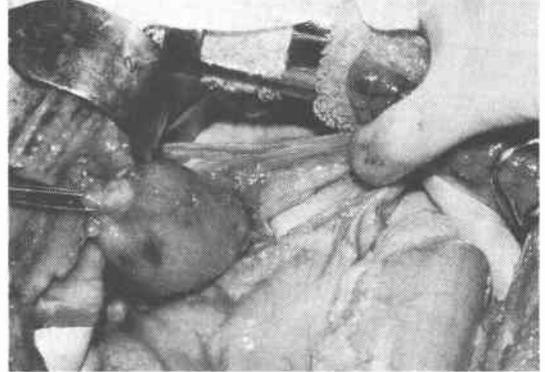
Fig. 1 Computed tomography (Case 1): An oval cyst adjacent to the stomach is located in the Bursa omentalis.



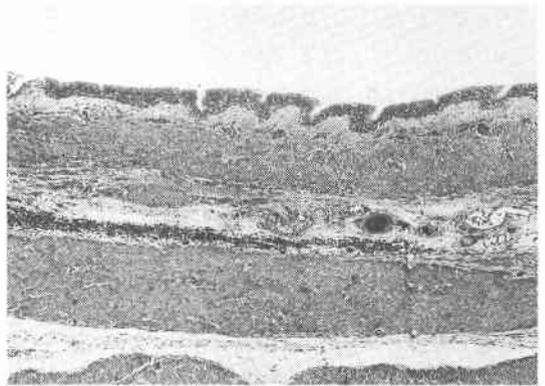
**Fig. 2** Ultrasonography (Abdominal transeverse scanning): The cyst has a well-developed wall.



**Fig. 3** Intraoperative findings: The cyst is firmly attached to the posterior wall of the stomach, and in part shares a common muscular wall with the stomach.



**Fig. 4** Microscopic findings: The cyst wall is lined with ciliated pseudostratified columnar epithelium (hematoxylin-eosin, original magnification  $\times 20$ ).



以上より外傷性腓反性嚢胞を疑い、昭和61年6月19日手術を施行した。

手術所見：腹腔内には炎症所見はなく、網嚢内には超鶏卵大の嚢胞を認めた。嚢胞は、胃体部後壁の一部と強固に結合しており、嚢胞の筋層は胃壁の筋層と連続していた(**Fig. 3**)。胃内腔との間に交通は認めず嚢胞のみを摘術した。

摘除標本肉眼所見：嚢胞の大きさは $7 \times 4 \times 4$ cmで比較的厚い筋層を有し、内面は平滑であった。嚢胞内容物は黄白色の粘液であった。

病理組織学的所見：嚢胞の内面はすべて多列線毛円柱上皮からなり、その下に3層の比較的厚い筋層を認めるが、軟骨は認めなかった(**Fig. 4**)。術中所見で胃と筋層を共有していたことと合わせ、胃重複症と診断した。

症例2：15歳、男性。

主訴：心窩部痛、嘔吐。

家族歴、既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和61年11月23日心窩部痛、嘔吐あり。11

月25日イレウスの診断にて当院へ入院した。

入院時現症：腹部は平坦、軟だが、下腹部に圧痛を認めた。

入院時検査成績：白血球の軽度増加を認めたが、その他の血液、生化学検査では正常であった。

腹部単純X線所見：入院時には下腹部に鏡面像を認めたが保存的療法にて数日後に消失した。

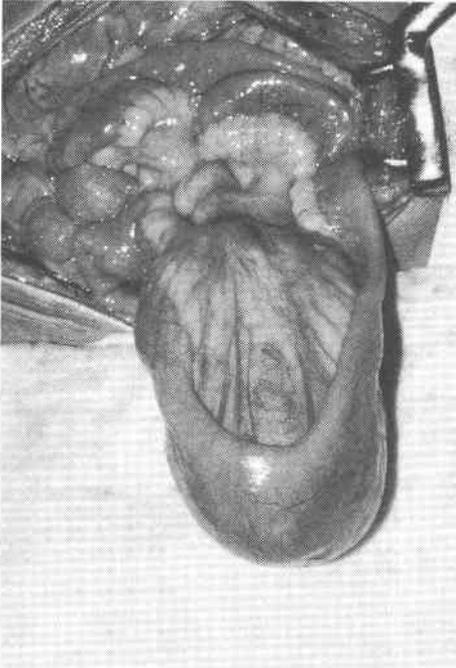
小腸造影所見：上部消化管の通過障害を疑ったが通過は良好で異常なしと判断した。

注腸造影所見：異常を認めなかった。

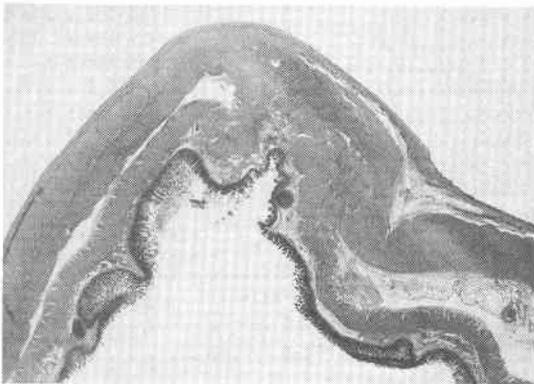
患者は再びイレウスとなり改善傾向がないため12月15日手術を施行した。

手術所見：Bauchin 弁から口側約1mの小腸間膜

**Fig. 5** Intraoperative findings (Case 2): A fist-sized cyst complicated with volvulus is found on the ileum.



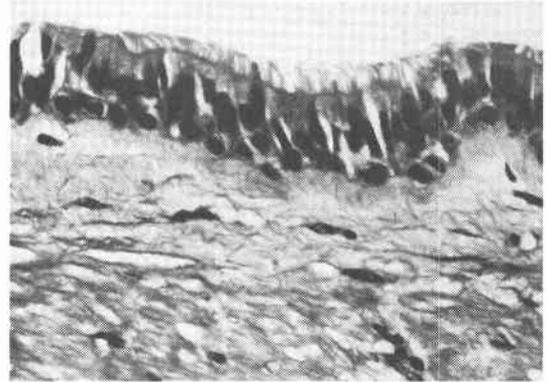
**Fig. 6** Microscopic findings: The cyst (above) shares a common muscular layer with ileum (below) (hematoxylin eosin, original magnification  $\times 2$ ).



に回腸と密着した手拳大の嚢胞があり、180°捻転していた (Fig. 5)。回腸を一部含め嚢胞を摘除した。

摘除標本肉眼所見：嚢胞の大きさは10×6.5×6.5 cmで嚢胞内容は黄白色の粘液であった。回腸内腔との交通はなかった。

**Fig. 7** Microscopic findings: The cyst wall is lined with ciliated pseudostratified columnar epithelium (hematoxylin-eosin, original magnification  $\times 200$ )



病理組織学的所見：嚢胞は厚い筋層を有し、その一部を回腸と共有していた (Fig. 6)。嚢胞の内面はすべて多列線毛円柱上皮からなっており (Fig. 7)、軟骨は認めなかった。以上より回腸重複症と診断した。

#### 考 察

消化管重複症 (以下本症) は従来, enteric cyst, enterogenous cyst, giant diverticula, ileum duplex などと呼ばれていた先天性疾患に対し, 1940年 Ladd & Gross によって提唱された総称名で, 舌根から肛門に至るいずれの部位にも発生する。Ladd & Gross は本症の定義として, 1) 内面にいずれかの消化管粘膜を有すること, 2) 壁外層に平滑筋層を有すること, 3) 消化管の一部と密着していること, の3点をあげている。

本症は比較的まれな疾患であり長嶺<sup>3)</sup>は1977年までの本邦報告例180例を集計している。それによれば発生部位では回腸末端・回盲部が最も多く35%を占め, 次いで結腸・直腸22.8%, 小腸18.3%の順である。性別では男性97例, 女性70例で男性に多く, 年齢別では15歳未満が128例, 15歳以上が50例で小児に多い。本症は形状から cystic type と tubular type に分けられるが前者が多い。合併症には, 重複腸管による圧迫, 腸重積, 腸捻転, 穿孔・穿通, 出血などがあり, ごくまれに悪性化も報告されている。本症には特異的な症状がなく術前の確定診断がつきにくい疾患で, イレウス, 腸重積, 腹部腫瘍などの術前診断が多い。

本症の発生原因には, 脊索障害の split notochord syndrome 説, 前腸からの bronchial bud の分離異常

とする tracheo-broncho-foregut duplication 説, 胎生期の腸管憩室や再疎通障害を原因とする mucosal disorder syndrome 説などがある<sup>4)</sup>。

本症は形態的にも組織学的にも多彩なため, Gross らの前述の定義が適合されがたいことがある<sup>5)</sup>。胎生期の前腸上皮は呼吸器系で明らかなように線毛上皮に分化しうる。しかも胎生期の前腸は一時期線毛円柱上皮で覆われており<sup>6)</sup>、食道・胃・十二指腸・肝・胆・膵は呼吸器系とともに前腸由来の臓器であることから、食道重複症では線毛円柱上皮を有する例がしばしばみられる<sup>7)</sup>。しかし線毛円柱上皮よりなる本症は、食道以外ではきわめてまれで、われわれが検索しえた胃重複症の本邦報告例46例中には認めなかった。また小腸では1例の学会報告<sup>8)</sup>があるのみであった。欧米の文献では線毛上皮を有する例が、自験例の様に胃<sup>9)</sup>、回腸<sup>10)</sup>の本症として、回腸<sup>11)</sup>、肝<sup>12)</sup>、前胸部<sup>13)</sup>の例が前腸嚢胞 (foregut cyst) として報告されている。

自験例1の発生機序は Gansler ら<sup>9)</sup>のように胎生期の肺芽の前腸からの分離異常<sup>4)</sup>と考えられる。回腸は中腸由来の臓器だが、自験例2は右肺葉間<sup>14)</sup>や前胸部皮下の例と同様に、胎生21日前後の前腸細胞の迷入によると考えられる。本症はあくまでも多種の原因から発生していると考えられる疾患の総称名であるため、Ladd & Gross の定義の厳密な適用の難しい例もある。自験例は2例とも厳密には Gross らの定義を満たしていないが、壁外層に比較的良好に発達した平滑筋層を有し消化管と共有したことから、粘膜に関しては前述のように考えられることをあわせ、本症と診断した。また胎生期の前腸 (foregut) を共通の発生由来とすることから、欧米では bronchogenic cyst, esophageal cyst, enteric cyst をまとめて、前腸嚢胞 (foregut cyst) と総称している。またその組織像から自験例は欧米で前腸嚢胞と呼ばれている範ちゅうにも属すると考えられる。

#### 文 献

1) Ladd WE, Gross RE: Surgical treatment of

- duplications of the alimentary tract. *Surg Gynecol Obstet* 70: 295—307, 1940
- 2) Sirivella S, Ford WB, Zikria EA et al: Foregut cysts of the mediastinum. *J Thorac Cardiovasc Surg* 90: 776—782, 1985
- 3) 長嶺信夫, 宮城 靖, 遠藤 巖ほか: 消化管重複症一症例報告並びに本邦報告例180例の統計的観察一. *外科診療* 19: 466—471, 1977
- 4) Vaage S, Knutrud O: Congenital duplications of the alimentary tract with special regard to their embryogenesis. *Prog Ped Surg* 7: 103—123, 1974
- 5) 池田光則, 佐藤元通, 東 権広ほか: 消化管重複症の2例一本症の定義について一. *小児外科* 15: 241—245, 1983
- 6) Raeburn C: Columnar ciliated epithelium in the adult esophagus. *J Path Bact* 63: 157—158, 1951
- 7) 上田裕美, 柳沢正弘, 長谷川洋一ほか: 食道重複症の1治験例. *日臨外医会誌* 44: 1214—1225, 1983
- 8) 西本隆重, 岡 栄, 林 和徳ほか: 胎生期食道粘膜のみられた回盲部消化管重複症の1症例. *日小児外会誌* 20: 274, 1984
- 9) Gansler S, Seidenberg B, Rifkin H et al: Ciliated lined intramural cyst of the stomach: Case report and suggested embryogenesis. *Ann Surg* 163: 954—957, 1966
- 10) Killpack WS: Duplication of the ileum. *Arch Dis Child* 28: 72—75, 1953
- 11) Lee JY, Shuster M, Duran H et al: Enteric cyst and abdominal pain in an adult. *J Med Soc N J* 72: 141—144, 1975
- 12) Wheeler DA, Edmondson HA: Ciliated hepatic foregut cyst. *Am J Surg Pathol* 8: 467—470, 1984
- 13) Patterson JW, Pittman DL, Rich JD: Presteral ciliated cyst. *Arch Dermatol* 120: 240—242, 1984
- 14) 佃 邦夫, 大藤 芳, 倉田 悟ほか: 右肺葉間に発見された食道重複症の1例. *日臨外医会誌* 48: 58—62, 1987

## Two Cases of Duplication of the Alimentary Tract Lined with Ciliated Columnar Epithelium

Toshio Uematsu, Hiroshi Kitamura, Masanori Iwase, Hajime Oguri, Osamu Tsuzaki and Yuji Nimura\*

Department of Surgery, Iwata Municipal General Hospital

\*First Department of Surgery, Nagoya University School of Medicine

We report two cases of duplication of the alimentary tract lined with ciliated pseudostratified columnar epithelium. One patient is an asymptomatic 14-year-old male. Duplication of the stomach was incidentally found by

computed tomography. On laparotomy, the duplication cyst,  $7 \times 4 \times 4$  cm in size, was found to be firmly attached to the posterior wall of the stomach, and in part shared a common muscular wall with the stomach. Histologically, the cyst was lined with ciliated pseudostratified columnar epithelium, and its wall was composed of three well-developed muscular layers. The other patient is a 15-year-old male with complaints of abdominal pain and vomiting. Laparotomy was carried out because of ileus. A duplication cyst,  $10 \times 6.5 \times 6.5$  cm in size, was found on the ileum and was complicated by volvulus. Histologically, the cyst was lined with ciliated pseudostratified columnar epithelium, and there was a common muscular layer between the cyst and the ileum. Duplications of the alimentary tract are of various types, presumably because they arise from several types of developmental errors. As is often the case with duplication of the esophagus, in our cases the cysts were lined with ciliated columnar epithelium. Thus, based on anatomical and histopathological features, we favor a primitive foregut origin for our cases.

**Reprint requests:** Toshio Uematsu First Department of Surgery, Nagoya University School of Medicine  
65 Tsurumai-cho, Showa-ku, Nagoya, 466 JAPAN

---