

回腸粘膜下腫瘍を呈した腹腔内デスマイド腫瘍による 成人腸重積症の1例

鴨川市立国保病院外科¹⁾, 千葉県立衛生短期大学²⁾, 千葉大学第2外科³⁾
伊賀病院⁴⁾, 帝京大学市原病院臨床病理⁵⁾

鍋谷 圭宏¹⁾ 中村 宏¹⁾ 今野 秀次¹⁾ 平嶋 毅²⁾
朱 琮杰³⁾ 伊賀 多朗⁴⁾ 長尾 孝一⁵⁾

症例は79歳の女性で、急性の腹痛、嘔気、嘔吐を主訴として腸閉塞の診断で入院した。腹部の単純X線、超音波、computed tomography 検査などから腸重積症を疑い、保存的にイレウス管による減圧をはかったが改善しないため、5日後に緊急手術を行った。開腹所見では回盲部腸重積症で、用手整復が困難なため回盲部切除と端々吻合術を施行した。切除標本では回盲弁から約20cmの回腸に3.5×3.0×2.5cmのポリープ状粘膜下腫瘍が存在し、重積先進部となっていた。組織学的には、粘膜下組織原発のまれな発育形式を呈した腹腔内デスマイド腫瘍と診断された。本症例では大腸腺腫症の併存はなく、腹腔内デスマイド腫瘍単独症例としては文献上本邦第16例目、さらに腸重積症をきたした症例としては本邦第1例目と思われる。術後経過は順調で、第31病日に軽快退院した。腸重積症の術前画像診断、特に腹部超音波検査の有用性を強調したい。

Key words: intra-abdominal desmoid tumor, intussusception in adult, ultrasonography for diagnosis of intussusception

はじめに

成人の腸重積症は小児の場合に比べてまれで、腫瘍性の器質的疾患を原因とする頻度が高いことが特徴とされている¹⁾。最近、腹腔内デスマイド腫瘍と診断された回腸粘膜下腫瘍によるきわめてまれな成人腸重積症例を経験したので、考察を加えて報告する。

症 例

症例：79歳、女性。

主訴：腹痛、嘔気、嘔吐。

既往歴：高血圧症にて近医加療中。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1990年6月上旬からの間歇的腹痛が6月20日より強度となり、加えて嘔気、嘔吐も出現し、6月21日に当科へ入院した。

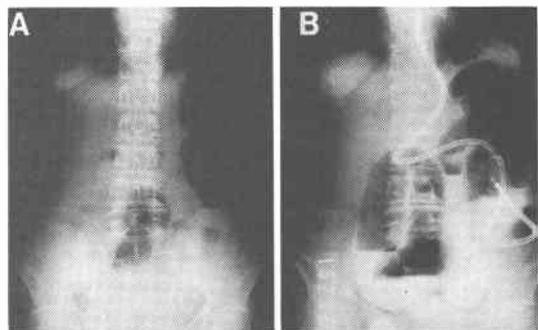
入院時現症：身長156.5cm、体重50.0kg、血圧160/80、脈拍80整、体温37.4℃、結膜に貧血、黄染なし。腹部は軽度膨隆し、腸雑音は亢進していたが腹膜刺激症状は認められなかった。右下腹部に弾性硬の疼痛性

腫瘍を触知した。表在リンパ節は触知しなかった。

入院時検査所見：末梢血検査で白血球数が13,900と増加し、腹部単純X線写真では鏡面形成を示す小腸ガス像が存在したが、そのほかには異常所見は認められなかった (Fig. 1A)。

入院後経過：腸閉塞の診断のもとに直ちにイレウス管を挿入し保存的に減圧を試みたが、翌日には、腹部

Fig. 1 A plain abdominal x-ray shows small intestinal gas and niveau formation at admission (A), and that of the next day shows much more gas and niveau clearly (B).



単純 X 線写真で小腸ガス像と鏡面形成がより著明になった (Fig. 1B). 腹部超音波検査では、横断像で高エコー層と低エコー層とが同心円状に描出され、いわゆる multiple concentric ring sign²⁾が右結腸曲付近や上行結腸に認められた (Fig. 2A, B). この部位は、腹部 computed tomography (CT) 検査でも肥厚した腸管壁の重層を示唆する腎臓形状 (reniform pattern)³⁾を呈していた (Fig. 3). 以上の所見より腸重積症と診断したが、治療を兼ねた注腸造影では病変部を描出しえなかった。保存的療法では改善しなかったため、6月26日に緊急手術を施行した。

手術所見：正中切開で開腹すると、腹水、癒着はなく、拡張した回腸を認めた。これを肛門側に検索する

Fig. 2 Ultrasonography reveals multiple concentric ring sign suggesting intussusception to right flexura (A), and in ascending colon (B).

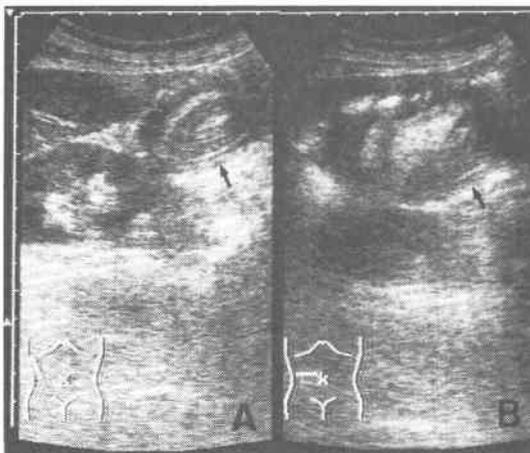


Fig. 3 CT scan shows reniform pattern suggesting intussusception of wall-thickened intestine.

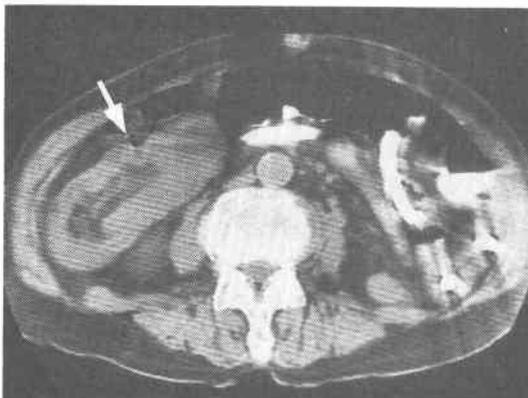


Fig. 4 Macroscopic findings of the resected specimen show pedunculated polyp of the ileum which is 3.5×3.0×2.5cm in size (longitudinal resection of the polyp).

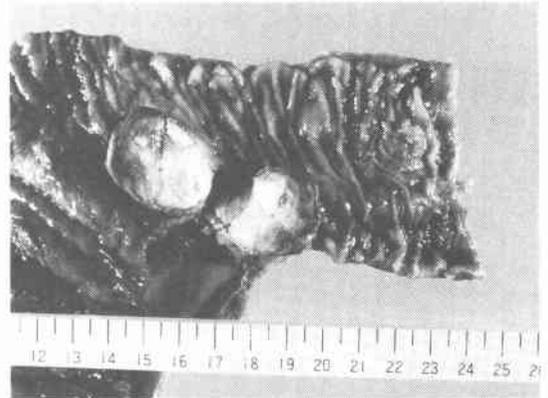
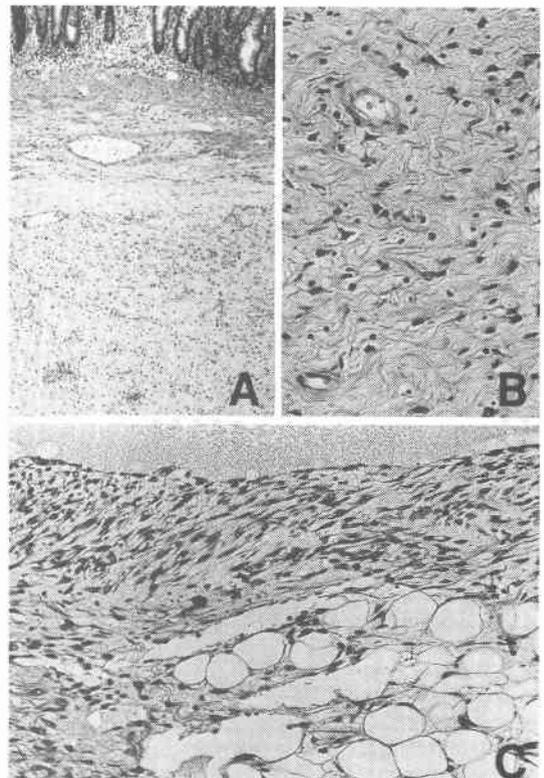


Fig. 5 Histological findings show submucosal tumor (H.E. ×5) (A), many spindle tumor cells which are considered proliferated fibroblasts and few inflammatory cells in the tumor (H.E. ×25) (B), and invasion of the tumor cells into fat tissue of the ileal mesentery, which suggests expansive development of this submucosal tumor (H.E. ×50) (C).



と、回盲部で腸重積をきたしていた。周囲のリンパ節腫大は認めなかった。用手整復困難で腸管の血行障害も見られたので、重積した回盲部を en bloc に切除し、断端を端々吻合して手術を終了した。

切除標本肉眼所見：切除した回腸は約30cm、結腸は約7cmで、回盲弁から約20cm口側の回腸に3.5×3.0×2.5cmの有茎性のポリープ状腫瘤が存在し、これが回腸-盲腸型の重積先進部となっていた。腫瘤の剖面は充実性で、灰白色であった (Fig. 4)。

病理組織学的所見：腫瘤は主に粘膜下層内に存在し、周囲組織との境界は比較的明瞭であった (Fig.

5A)。腫瘤内には不規則な細胞突起を持った紡錘形の腫瘍細胞がほぼ均等に分布しており、核の異型はほとんど認められなかった。この細胞の免疫組織化学的染色では、S100蛋白(±)、keratin(-)、vimentin(+)、actin (+)であった。しかし、好酸球、形質細胞などの炎症細胞浸潤はほとんど見られなかった (Fig. 5B)。さらに特徴的な所見として、回腸壁外の腸間膜脂肪組織にも腫瘤内と同様の腫瘍細胞の伸展が認められ、病変の広がりを示唆していた (Fig. 5C)。以上の組織像を呈した本腫瘤は、鑑別診断困難であったが、きわめてまれな粘膜下組織原発の腹腔内デスマイド腫

Table 1 Reported cases of intra-abdominal desmoid tumor without polyposis coli in the Japanese literature

No.	Author	Year	Age	Sex	Chief Complaints	Primary organ	Maximal Diameter (cm)	Operation	
								Tumor Removal	Resection of Intestine
1	Mori et al.	1960	61	F	Abdominal Tumor	Mesentery (Colon)	30	+	unknown
2	Ishiguro et al.	1966	19	M	Abdominal Dilatation	Mesentery (Ileum)	27	+	+
3	Shindou et al.	1970	20	M	Abdominal Swelling and Pain	Mesentery (Ileum)	21	+	+
4	Ro et al.	1977	79	M	Abdominal Tumor	Mesentery (Jejunum)	10	+	+
5	Nishio et al.	1979	33	M	Abdominal Dilatation	Mesentery (Ileum)	24	+	+
6	Nojiri et al.	1980	33	M	Abdominal Dilatation	Mesentery (Small Intestine)	unknown	+	+
7	Satoh et al.	1981	44	M	Abdominal Tumor	Mesentery (Ileum)	7	+	+
8	Hayashi et al.	1982	49	F	Abdominal Dilatation	Mesentery (Jejunum)	① 13 ② 6	+	+
9	Akagi et al.	1984	34	M	Left Hypochondralgia	Omentum	17.9	+	+
10	Tanaka et al.	1985	64	M	Abdominal Pain, Melena	Duodenum	5	+	+
11	Akiyama et al.	1985	32	F	Melena	Pelvis	unknown	+	-
12	Takamiya et al.	1987	29	F	① Abdominal Tumor ② unknown (Recurrence) ③ unknown (Recurrence)	Mesentery (Colon) Mesentery (Small Intestine) Mesentery (Small Intestine)	unknown unknown unknown	+	+
13	Takayama et al.	1987	65	M	Abdominal Tumor	Mesentery (Colon)	unknown	unknown	unknown
14	Shiiki et al.	1987	72	F	Abdominal Tumor	Mesentery (Jejunum)	7	+	+
15	Kamiizumi et al.	1990	61	M	① Gluteal Tumor ② Pelvic Tumor (Recurrence) ③ Pelvic Tumor (Recurrence → Malignant)	Pelvis Pelvis Pelvis	14 10.5 unknown	+	-
16	Present Case	1990	79	F	Abdominal Pain, Nausea, Vomiting	Ileum	3.5	+	+

瘍と診断された。

術後経過は良好で、第31病日に軽快退院した。1991年1月現在、症状の再発なく健在である。なお、術後の検査にて大腸腺腫症は認められていない。

考 察

一般にデスマイド腫瘍は、腹壁デスマイド、腹壁外デスマイド、腹腔内デスマイドの3つに大別される⁴⁵⁾。大腸腺腫症(またはGardner症候群)の合併が注目されている⁶⁾腹腔内デスマイドはまれで、現在までに本邦では約30例の報告をみるに過ぎない。このうち、大腸腺腫症を合併しない腹腔内デスマイド単独症例は、調べた限りでは自験例を含めて16例^{5)7)~14)}のみと思われる(Table 1)。

年齢は19歳から自験例を含む79歳まで各年齢層にみられ、性別は10:6で男性にやや多い。主訴は腹部(臀部)腫瘤、腹部膨満感など腫瘤の圧迫による症状が12例と多いが、これは、11例が腸間膜(特に小腸間膜)原発であること、文献上記載のある腫瘍最大径が平均14cmと大きいことが原因であろう。

成人の腸重積症の原因疾患として、小腸のinflammatory fibroid polyp (IFP)も念頭におくべきとの報告が近年みられる¹⁵⁾。自験例も、鑑別上IFPが疑われた。しかし、好酸球や形質細胞の浸潤はIFPに特異的ではない¹⁶⁾とはいうものの組織学的に重要な所見で、自験例ではこれらの炎症細胞浸潤に乏しすぎる点からIFPは否定的である。加えて、紡錘形の腫瘍細胞がmyofibroblastに類似しており、免疫組織化学的にactin染色(+)からもmyofibroblast由来であることが考えられること、腸間膜脂肪組織への腫瘍細胞の伸展などが診断の根拠となった。十二指腸の粘膜下腫瘤を呈した症例¹⁰⁾が報告されているが、腸重積症をきたした腹腔内デスマイド腫瘍は本邦ではまだ報告をみない。

本症の治療は、腫瘍のみの摘出で終了したと思われる症例は1例だけで、最終的に13例で腸管の切除が併施されている。2例に再発がみられており、再発予防のためにも、遺残のない十分な切除、比較的広範な摘出が必要である⁴⁾¹⁴⁾とされている。

腸重積症の診断において、腹部の超音波やCTなどの画像診断の有用性が報告されており²⁾³⁾¹⁷⁾、自験例でも有用であった。特に、腹部超音波検査は無侵襲に短時間で施行しうるので、腸重積症が疑われた場合に第1選択の検査となりうる¹⁷⁾こと、そのさいにはさまざまな腫瘍性病変の存在を念頭におくことが肝要である

と考える。

文 献

- 1) 堀 公行: 成人腸重積症. 外科 38: 692-698, 1976
- 2) Holt S, Samuel E: Multiple concentric ring sign in the ultrasonographic diagnosis of intussusception. Gastrointest Radiol 3: 307-309, 1978
- 3) Merine D, Fishman EK, Jones B et al: Enterocentric intussusception: CT findings in nine patients. AJR 148: 1129-1132, 1987
- 4) Kim DH, Goldsmith HS, Quan SH et al: Intra-abdominal desmoid tumor. Cancer 27: 1041-1045, 1971
- 5) 椎木滋雄, 桑田康典, 柏原瑩爾ほか: 小腸間膜より発生した腹腔内デスマイド腫瘍の1例. 日臨外医学会誌 48: 1704-1708, 1987
- 6) McAdam WAF, Goligher JC: The occurrence of desmoids in patients with familial polyposis coli. Br J Surg 57: 618-631, 1970
- 7) 森 正英: 巨大なる腸間膜根部腫瘍. 日外宝 29: 694, 1960
- 8) 進藤勝久, 安富正幸, 河原 勉ほか: 巨大な腸間膜腫瘍の1例. 外科治療 22: 591-594, 1970
- 9) 佐藤幹雄, 三戸康郎, 西村栄彦ほか: 小腸間膜より発生した腹腔内デスマイドの1治療例. 臨外 36: 1013-1017, 1981
- 10) 田中豊治, 石田元比古, 小野成夫ほか: 十二指腸壁より発生した、きわめて稀れな腹腔内デスマイドの1治療例. 歯科学報 85: 1085-1086, 1985
- 11) 秋山義之, 宮元秀昭, 星野高伸ほか: 直腸粘膜下腫瘤として発見された骨盤内Desmoid tumorの1例. 日臨外医学会誌 46: 1206-1207, 1985
- 12) 高宮有介, 安井 昭, 西田佳昭ほか: 再発を繰り返した腹腔内および腹壁デスマイド腫瘍の1手術例. 日消病会誌 84: 792, 1987
- 13) 高山隼人, 瀬戸口正幸, 井上啓爾ほか: Abdominal Desmoidの1例. 日消病会誌 84: 1897-1898, 1987
- 14) 上泉 洋, 佐藤直樹, 三澤一仁ほか: 再発を繰り返した悪性化した巨大骨盤腔内デスマイドの1例. 日臨外医学会誌 51: 1354-1358, 1990
- 15) 津嶋秀史, 日下部輝夫, 嘉悦 勉ほか: 回腸inflammatory fibroid polypの1例. 日臨外医学会誌 50: 1576-1582, 1989
- 16) 飛鳥田一朗, 秋庭真理子, 中山信彦ほか: 小腸に発生した好酸球性肉芽腫(inflammatory fibroid polyp)の1例. 最新医 33: 800-804, 1978
- 17) 高 濟峯, 上野正義, 矢野友昭ほか: 超音波検査が有用であった回腸脂肪腫による成人腸重積症の1例. 日臨外医学会誌 51: 1503-1507, 1990

**A Case of Intussusception in Adult due to Submucosal Intra-abdominal
Desmoid Tumor of the Ileum**

Yoshihiro Nabeya¹⁾, Hiroshi Nakamura¹⁾, Hideji Konno¹⁾, Tsuyoshi Hirashima²⁾, Chung Chieh Chu³⁾,
Taro Iga⁴⁾ and Koichi Nagao⁵⁾

¹⁾Department of Surgery, Kamogawa Municipal Hospital

²⁾Chiba Prefectural College of Health Science

³⁾Second Department of Surgery, Chiba University

⁴⁾Iga Hospital

⁵⁾Department of Surgical Pathology, Ichihara Hospital of Teikyo University

The patient was a 79-year-old woman who was admitted to our hospital with chief complaints of acute abdominal pain, nausea and vomiting. From the findings of plain abdominal x-ray, ultrasonography, computed tomography and other procedures, intussusception was suspected. At first, a suction tube was inserted for decompression but improvement was not seen. Five days later, an emergency operation was performed. The operative finding revealed an ileocaecal intussusception, and ileocaecal resection followed by end-to-end anastomosis was carried out, as manual reposition was difficult. The resected specimen revealed a pedunculated polypoid submucosal tumor, measuring $3.5 \times 3.0 \times 2.5$ cm, in the ileum about 20 cm from the ileocaecal valve, which was the lead point of the intussusception. Histological diagnosis was a submucosal intra-abdominal desmoid tumor. The patient was free of polyposis coli. This is thought to be the 16th case of a sole intra-abdominal desmoid tumor as well as the first case in which intussusception developed in the Japanese literature. The postoperative course was satisfactory and the patient was discharged from the hospital on the 31st day after the operation. The usefulness of preoperative imaging techniques, particularly ultrasonography, for diagnosing intussusception should be emphasized.

Reprint requests: Yoshihiro Nabeya Department of Surgery, Kamogawa Municipal Hospital
233 Miyayama, Kamogawa, 296-01 JAPAN
