

## 鼠径ヘルニア嚢腫瘍より発見された腹膜原発漿液性乳頭腺癌

東京慈恵会医科大学第1外科, 同 病理学教室\*, 小倉病院外科\*\*

河野 修三 下田 忠和\* 飯野 年男  
二階堂 孝\* 梅田 耕明\*\* 桜井 健司

症例は68歳の女性。平成5年7月に左鼠径部の有痛性腫瘍を主訴に来院し、大網のヘルニア嵌頓の診断にて手術を施行した。ヘルニア嚢には3×2cmの腫瘍を認め、同部を切除した。病理検査の結果が転移性腺癌であったため、生殖器および消化器の精査を行い諸検査で異常所見を認めなかったため、腹腔鏡検査に引き続き、開腹手術を施行した。大網には多発性散在性に癭痕様病巣が存在したので大網嚢切除を施行した。大網およびヘルニア嚢腫瘍の病理組織学的検査から腹膜原発漿液性乳頭腺癌と診断した。ヘルニア嚢に悪性腫瘍を発見することはまれなことである。腹膜原発の漿液性乳頭腺癌は比較的可成な疾患であるが、腹水貯留による腹部膨満感や腹部腫瘍触知により診断されることが通常である。ヘルニア嚢の腫瘍より同疾患が診断された報告はほかになく、非常に興味深い症例と考えた。

**Key words:** peritoneal serous papillary adenocarcinoma, hernia-sac tumor, peritoneoscopy

### はじめに

ヘルニア嚢に悪性腫瘍を発見することはまれなことである。悪性腫瘍が、切除されたヘルニア嚢より発見される可能性は0.07~0.4%といわれている<sup>1)~4)</sup>。腹膜原発漿液性乳頭腺癌 (peritoneal serous papillary adenocarcinoma) は、最近数々の報告があるが、比較的可成な疾患である。同疾患は卵巣の漿液性腺癌に類似した腫瘍で、砂粒小体 (psammoma body) をしばしば伴い、両側卵巣に異常所見はなく、腹膜原発の腺癌と考えられている<sup>5)~7)</sup>。初発症状としては、腹水による腹部膨満感と有痛性の腹腔内腫瘍触知が大部分であり、卵巣癌の予防的卵巣摘出術後に発見される症例も少なからず報告されている<sup>8)~9)</sup>。ヘルニア嚢の腫瘍から同疾患が診断された報告はみられず、ヘルニア嚢に発見された悪性腫瘍と腹膜原発の漿液性乳頭腺癌を中心に文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

症例：68歳，女性

主訴：鼠径部有痛性腫瘍

既往歴：28歳時に両側卵管結紮術施行。55歳時，58歳時に経腔的子宮頸部ポリープ切除術施行。

<1994年10月12日受理>別刷請求先：河野 修三  
〒105 港区西新橋3-25-8 東京慈恵会医科大学  
第1外科

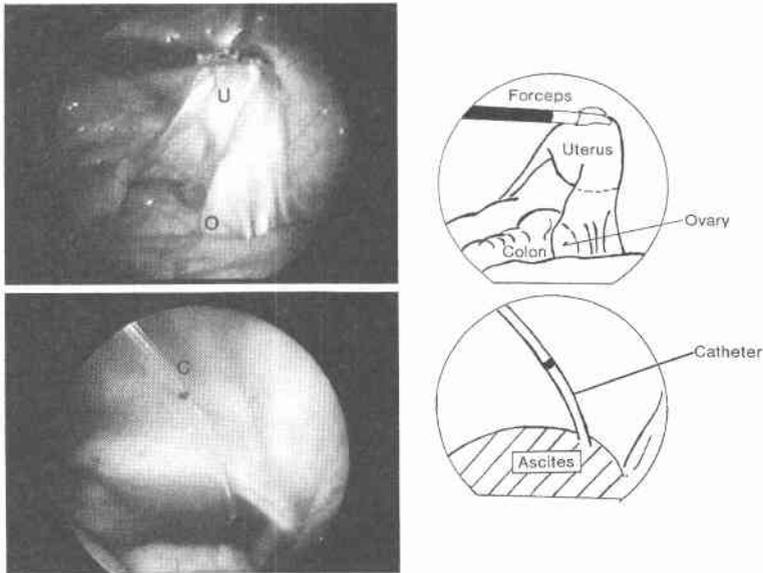
現病歴：患者は1993年7月18日より左鼠径部の膨隆および圧痛に気づき、同7月22日自発痛が増強し、外来を受診した。来院時全身状態は良好で、身体所見では左鼠径部に直経約5cmの有痛性腫瘍を触知する以外には異常を認めなかった。腫瘍は外鼠径輪の位置と一致し、圧痛は強度であった。血液、生化学検査はすべて正常で、腹部単純X線検査でニボーを認めなかった。大網の鼠径ヘルニア嵌頓の診断で、同日入院手術を施行した。

手術所見：腫瘍直上を通る鼠径靭帯より頭側2cmの斜切開で皮切した。腫瘍は、3×2cm白色弾性硬で、皮下の脂肪織内に存在し、外鼠径輪に浸潤しており、ヘルニア嚢と境界不明であった。外腹斜筋腱膜を切開し、ヘルニア嚢の高位結紮に伴い、腫瘍を鼠径靭帯の一部と周囲の脂肪織を含めて切除した。肉眼上の腫瘍は完全に切除され、病理組織検体として提出した。外鼠径ヘルニアは Bassini 法で修復した。

病理組織学的所見：腫瘍は線維性脂肪織の中に中皮腫類似の腺癌の浸潤を認めた。一部に腹膜様の構造がみられた。

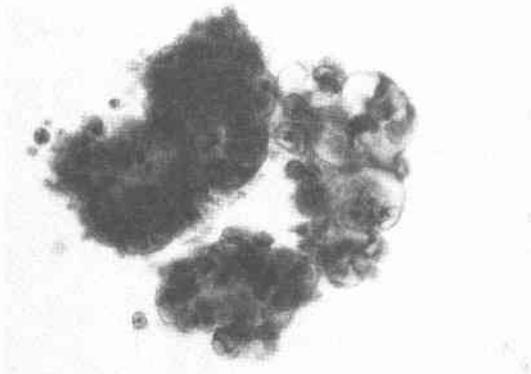
経過：初回手術の後、患者の全身状態は良好であった。病理検査結果から、消化管および卵巣からの腹膜転移を疑い、検査スケジュールをたてた。上部、下部消化管内視鏡検査および腹部 computed tomography 検査上は異常所見が認められず、経腔的子宮擦過細胞

**Fig. 1** Laparoscopy revealed the normal ovary (O) and uterus (U). Cytology were performed by catheter (C) under laparoscope.



診は class-I であった。腫瘍マーカーでは carbohydrate 19-9 (CA19-9) が 45U/ml と異常値を示したが、CEA (carcino embryonic antigen) および carbohydrate-125 (CA-125) は正常値であった。また Ga-scintigraphy では腹部中央に集積を認めた。各種検査によって原発巣が診断できなかったため、1993年 8月18日に再入院し翌日腹腔鏡検査を施行した (Fig. 1)。腹膜には明らかな播種性病巣がみられず、卵巣、子宮、胆嚢その他可視域には、異常を認めなかった。黄色腹水が少量存在したので細胞診に提出した。腹水細胞診では、軽度炎症性細胞と大型異型細胞の集塊が

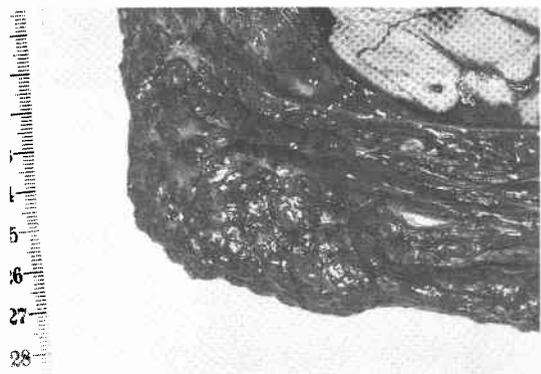
**Fig. 2** Cytology showed papillary clumping with large atypical cells. (Papanicolaou stain,  $\times 200$ )



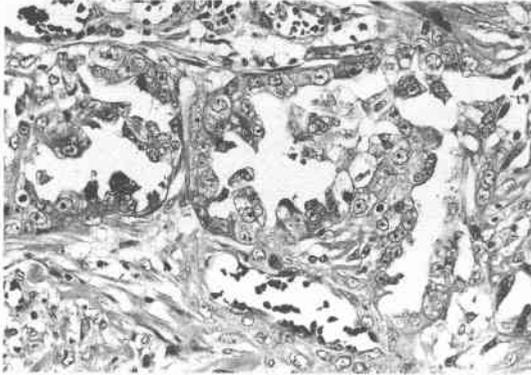
みられた (Fig. 3)。部分的には細胞の乳頭状配列も混在し、中心性の明確な核小体と淡い胞体を認め、腺癌と診断した。同 9月13日試験開腹術を施行した。

再手術所見：上下腹部正中切開にて開腹した。腹腔内には少量の黄色腹水が存在していた。Douglas 窩には米粒大結節が少数存在し、腹膜播種病巣と判断した。初回手術創下には腫瘤を触知せず、腹腔側からも再発を認めなかった。肝臓、胆嚢、膵臓、脾臓、胃、小腸、大腸、副腎、卵巣、子宮では、触診、視診上腫瘤は認められなかった。卵巣を摘出し病理検査に摘出したが、

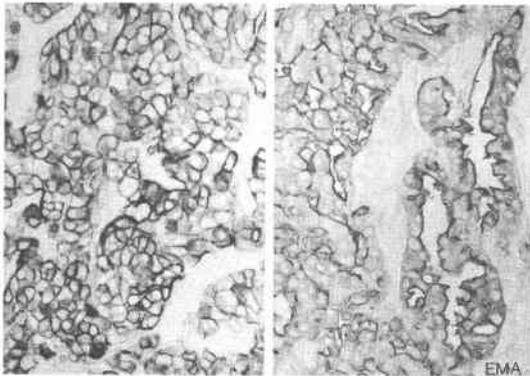
**Fig. 3** Macroscopic findings of the resected omentum showed multiple cicatrices ( $\rightarrow$ ) without any gross tumors. (H-E stain  $\times 100$ )



**Fig. 4** Microscopic findings showed tubulopapillary proliferation with large atypical cells.



**Fig. 5** Immunohistochemical staining of Cytokeratin (CAM 5.2) and epithelial membrane antigen (EMA) showed both positive in omental constriction.



原発巣は特定できなかった。大網は収縮しており、肉眼的には明らかな腫瘍塊はみられなかったが、瘢痕様病変を多発性散在性に認めた (Fig. 3)。大網嚢切除術を施行し、腹腔内に留置カテーテルを挿入し、閉腹時に mitomycin C (MMC) 10mg を腹腔内投与した。

病理組織学的所見：組織学的に、ヘルニア嚢切除材料および大網切除材料はほぼ同一の組織像を呈した (Fig. 4)。瘢痕様病変の周囲では硬化性変化を伴って、腫瘍細胞の充実性増殖がみられた。部分的には管状～乳頭状構造を呈し、個々の腫瘍細胞は立方状で、比較的豊富な顆粒状～弱好酸性胞体および核小体の明瞭な円形核を有していた。核はおおむね単層で重層化は目立たず、管状構造を示す部分では中皮細胞の配列に類似した釘様配列も認められた。以上より

Hematoxylin-Eosin (H-E) 染色標本上は腺癌が最も考えられた。また間質における毛細血管網は豊富で、部分的には腫瘍細胞の胞体内に赤血球を入れた構造や、個々の腫瘍細胞の胞体内に赤血球を容する空胞化がみられたため、類上皮型の血管肉腫も鑑別疾患として挙げられた。鑑別のため、特殊染色を施行した。アルシアン青染色で、管状～乳頭状構造の部分は、腫瘍細胞表面の陽性像を示した。免疫組織学的検索において、サイトケラチン (CAM5.2)、epithelial membrane antigen (EMA) および ulex europaeus agglutinine-I (UEA-I) が陽性で、第8因子関連抗原、癌胎児性抗原、S100蛋白、ビメチンは陰性であった (Fig. 5)。最終的には、細胞型が円板状～立方状で、PAS 陽性グリコーゲン顆粒を認めることや、免疫染色の結果から腹膜原発漿液性乳頭腺癌と診断した。手術後 Cisplatin 100mg ip. 1回投与し、その後1か月1回の Carboplatin 50mg ip. を施行した。腹水細胞診は5か月陰性化しており、その他の部位にも転移、再発を認めていない。

#### 考 察

鼠径ヘルニアの手術は一般化されている。悪性腫瘍が、切除されたヘルニア嚢から発見される可能性は 0.07～0.4%といわれている<sup>1)~4)</sup>。ヘルニア嚢に関係する病変は intrasaccular, saccular と extrasaccular に分類される。Intrasaccular の neoplasm では、膀胱、大腸、虫垂の腫瘍と大網転移性病変が報告されている。Saccular の neoplasm としては、原発性腫瘍として中皮腫が、また転移性腫瘍として前立腺、卵巣、大腸、膵臓などの腹膜播種が報告されている。Extrasaccular の腫瘍としては精索由来の脂肪腫が圧倒的に多いが、悪性腫瘍としては脂肪肉腫や Hodgkin リンパ腫が報告されている<sup>2)3)</sup>。Nicholson ら<sup>4)</sup>は22,816例の鼠径ヘルニアのうち15例 (0.07%) にヘルニア嚢内に転移性悪性腫瘍を認めている。症状は腫瘤触知が8例 (53%)、腹痛が7例 (47%)、体重減少が4例 (27%)、鼠径部痛が3例 (20%)、腹満が2例 (13%) であった。組織学的には、15例中6例 (40%) が消化管由来腺癌で、3例 (20%) が卵巣癌、2例 (13%) が悪性中皮腫、2例 (13%) が前立腺癌、2例 (13%) が原発不明であった。他の報告では<sup>5)10)</sup>、転移性腫瘍が saccular に発見された場合の原発は大腸が最も多く、胃、扁桃腺、皮膚 (melanoma)、心膜なども報告されている。今回ヘルニア嚢の腫瘍から腹膜原発漿液性乳頭腺癌が診断された。同疾患がヘルニア嚢に転移したという報告は

他に例をみない。

ヘルニア嚢腫瘍の病理検査結果は腺癌であったが、腹腔内臓器に対する諸検査で異常所見が認められなかったので、腹腔鏡検査を施行した。原発不明癌に関する腹腔鏡の有用性についてはすでに報告されている<sup>11)</sup>。Bradyら<sup>12)</sup>は、原発不明の癌性腹膜炎や、小さな肝転移病巣の存在が疑われる25症例に腹腔鏡検査を施行して、12例(48%)に診断がついたとしている。今回の腹腔鏡検査では、腹水細胞診により腺癌の診断を得た。腹腔鏡を用いた生検は1933年に初めて報告<sup>13)</sup>され、その後数々の改良が加えられている。腹水細胞診は癌性腹膜炎の原発部位の予想に有用である<sup>11)14)</sup>。今回の腹水細胞診でも腺癌の診断がつき、腹膜原発漿液性乳頭腺癌の診断のきっかけとなった。局在診断としてのGa scintigraphyは、大網の病巣を描出し、有用な検査と判断した。

今回は開腹手術により腹膜原発漿液性乳頭腺癌の確定診断を得た。本邦での同疾患の報告は3例のみで<sup>7)15)</sup>、病理所見を伴う詳細な報告は辻村らの報告<sup>7)</sup>のみである。腹膜原発漿液性乳頭腺癌は、組織学的に卵巣の漿液性腺癌と類似した腫瘍で、両側卵巣に異常はないもので、腹膜原発の腺癌と考えられている。病理学的には、腫瘍細胞は管状乳頭状構造を保ち、砂粒小体を有することが多い。EMA, Cytokeratin, CA-125の免疫染色で陽性所見を示す率が高いことも報告されている<sup>7)</sup>。同疾患の初発症状としては、腹水による腹部膨満感と有痛性の腹腔内腫瘍触知が大部分であり、卵巣癌の予防的卵巣摘出術後に発見される症例も少なからず報告されている<sup>6)7)9)</sup>。今回の症例では、腹水は極少量で腹部膨満感もなく、鼠径ヘルニアの転移性腫瘍で発見された。ほかの報告に比べ早期に発見されたと考えられた。

腹膜原発漿液性乳頭腺癌は、卵巣の漿液性腺癌と類似していることと、腹膜が卵巣表層上皮と発生学的に共通の上皮に由来していることより、卵巣癌に準じたCisplatinをbaseとする化学療法が選択される。化学療法が卵巣癌によく奏効することは知られている。腹膜原発漿液性乳頭腺癌も、化学療法に奏効する症例が多く報告されており、5年以上の生存例も報告されている<sup>5)16)17)</sup>。原発不明の女性の癌性腹膜炎に対しては、Cisplatinをベースとする卵巣癌に準じた化学療法を施行して32~39%の奏効率が認められている<sup>18)</sup>。この高い奏効率は、女性の原発不明の癌性腹膜炎の患者の多くに腹膜原発漿液性乳頭腺癌が含まれていること

と、関係すると考えられる<sup>18)</sup>。腹膜原発漿液性乳頭腺癌での転移の大部分は腹膜播種である。ほとんどの症例で大網に腫瘍を触知している<sup>5)</sup>。大網以外では、大腸に多く、後腹膜臓器、膀胱、肝臓、脾臓、横隔膜に及ぶことも報告されている<sup>5)</sup>。同疾患では、化学療法前のtumor reduction surgeryも評価されている<sup>17)</sup>。

腹膜原発漿液性乳頭腺癌ではCA-125が上昇し<sup>5)6)7)</sup>、経過観察中に予後の判定に有用であるという報告<sup>5)</sup>もある。本症例では術前にCA-125の上昇は認めず、CA19-9の軽度上昇を認めたが、術後に正常化した。

本症例では腹腔内留置リザーバーから抗癌剤(Carboplatin 50mg ip.)を投与して、5か月間腹水細胞診は陰性化しており、有効な治療法であると判断した。

#### 文 献

- 1) Yoell JH: Surprises in hernia sacs. Calif Med 91: 146—148, 1959
- 2) Kassin MA, Munoz E, Laughlin A et al: Value of routine pathology in herniorrhaphy performed upon adults. Surg Gynecol Obstet 163: 518—522, 1986
- 3) Roslyn JJ, Stabile RE, Ranganath C: Cancer in inguinal and femoral hernias. Am Surg 46: 358—362, 1980
- 4) Nicholson CP, Donohue JH, Thompson GB et al: A study of metastatic cancer found during inguinal hernia repair. Cancer 69: 3008—3011, 1992
- 5) Altrus MM, Aviram R, Cohen I et al: Primary peritoneal papillary serous adenocarcinoma: clinical and management aspects. Gynecol Oncol 20: 230—236, 1991
- 6) Kemp GM, Hsiu JG, Andrews MC: Papillary peritoneal carcinomatosis after prophylactic oophorectomy. Gynecol Oncol 47: 395—397, 1992
- 7) Tsujimura T, Takeda M, Terada N et al: Two cases of peritoneal serous papillary adenocarcinoma. Acta Pathol Jpn 41: 642—646, 1991
- 8) Piver MS, Jishi MF, Tsukada Y et al: Primary peritoneal carcinoma after prophylactic oophorectomy in women with a family history of ovarian cancer. Cancer 71: 2751—2755, 1993
- 9) Rosen HR, Rosen AC, Preiser J et al: Non-ovarian peritoneal papillary serous carcinoma with high CA125 levels. Arch Gynecol Obstet 251: 199—202, 1992
- 10) Kanzer B, Rosenberg RF: Unusual contents in hernia sacs. N Y State J Med 83: 1055—1056,

- 1983
- 11) Childers JM, Hatch KD, Surwit EA: Office laparoscopy and biopsy for evaluation of patient with intraperitoneal carcinomatosis using a new optical catheter. *Gynecol Oncol* 47: 337-343, 1992
  - 12) Brady PG, Peebles M, Goldschmid S: Role of laparoscopy in the evaluation of patients with suspected hepatic or peritoneal malignancy. *Gastrointest Endosc* 37: 27-30, 1991
  - 13) Fervers C: Die Laparoskopie mit dem Cystoskop. *Med Klin* 29: 1042-1045, 1933.
  - 14) Gupta RK, Prasad J, Stewart RJ: Fine catheter aspiration cytology of the peritoneal cavity in the diagnosis of a metastatic tumor. *Acta Cytol* 34: 434-436, 1990
  - 15) 牛嶋潤一郎, 藤井 徹, 白橋 浄ほか: 腸間膜原発と思われる腺癌の1症例. *日内会誌* 81: 1698-1699, 1992
  - 16) Chen KTK, Flam MS: Peritoneal papillary serous carcinoma with long-term survival. *Cancer* 58: 1371-1373, 1986
  - 17) Strnad CM, Grosh WW, Baxter J: Peritoneal carcinomatosis of unknown primary site in women. *Ann Intern Med* 111: 213-217, 1989
  - 18) Wood AJJ: Treatment of patient with cancer of an unknown primary site. *N Engl J Med* 329: 257-263, 1993

### Peritoneal Serous Papillary Adenocarcinoma found from Tumor within an Inguinal Hernia Sac

Shuzo Kohno, Tadakazu Shimoda\*, Toshio Iino, Takashi Nikaido\*,  
Koumei Umeda\*\* and Kenji Sakurai

Department of Surgery I, Department of Pathology\*, Jikei Medical University, Ogura Hospital\*\*

A 63-year-old woman was admitted with a painful left groin lump on July 18, 1993. Under a clinical diagnosis of incarcerated left inguinal hernia, herniorrhaphy was performed. The sac was found to contain nests of cells consistent with a metastatic adenocarcinoma. The patient was readmitted for further work up. Gynecological examination was within normal limits. Computed tomographic (CT) scans of the chest, abdomen, and pelvis were also negative. Gastrointestinal and colon fiberoscopy was performed, but was also negative. On September 13, 1993, the patient underwent exploratory laparotomy, following a laparoscopy. Laparotomy revealed multiple and polynetic cicatrices in the omentum. Omentobrusectomy was performed. The pathologist diagnosed the omental and inguinal tumor as a peritoneal serous papillary adenocarcinoma. Tumors within hernial sacs are rare. Peritoneal serous papillary adenocarcinoma is relatively rare, but is occasionally diagnosed due to abdominal tumor or distension. We have described the unusual case of inguinal hernia-sac cancer. To the best of our knowledge, this is the first report of peritoneal serous papillary adenocarcinoma in an inguinal hernial sac.

**Reprint requests:** Shuzo Kohno Department of Surgery I, Jikei Medical University  
3-25-8 Nishi-Shinbashi, Minato-ku, Tokyo, 105 JAPAN