

空腸十二指腸重積をおこし大量下血をきたした 十二指腸 Brunner 腺過誤腫の1例

足利赤十字病院外科, 浜松医科大学第2外科**

(*現・浜松医科大学第2外科)

小島 由光* 藤崎 真人 亀山 哲章 平畑 忍
前田 大 長谷川博俊 松本 昌久 中村 達**

25歳の男性患者が嘔吐および貧血をきたし、幽門狭窄が疑われて紹介された。上部消化管内視鏡検査で幽門狭窄を認めたが、内視鏡の通過は容易であった。腹部CT検査では、後腹膜腫瘍が疑われたが、診断のつかないまま精査入院中、突然、大量の下血をきたした。腹部血管造影検査を施行したが、出血源は不明であり貧血がさらに増悪したため、緊急開腹術を施行した。開腹所見では、十二指腸球部に発生した直径約5cmの腫瘍が、十二指腸の粘膜脱を伴いながらポリープ状に Treitz 靱帯より遠位にまで達し、これを先進部として近位空腸が十二指腸3rd portion に逆行性に空腸十二指腸重積をきたしていた。出血源はこの腫瘍であり、病理診断は Brunner 腺過誤腫であった。十二指腸の腸重積は、解剖学的にもまれであるが、本症例をもとにその病型分類、発症機序および消化管造影 X 線画像について文献的検討を加えた。

Key words: Brunner's gland hamartoma, gastrointestinal hemorrhage, jejunoduodenal intussusception

はじめに

十二指腸腫瘍は比較的まれな疾患であるが、近年の内視鏡検査法の普及につれて、その報告例は増加している。また、十二指腸腫瘍による腸重積は、その解剖学的な特徴からも極めてまれであり、本邦における十二指腸と空腸との腸重積の報告は、十二指腸空腸重積の1例¹⁾をみるのみである。我々は大量下血を契機として緊急手術を施行し、十二指腸球部 Brunner 腺過誤腫による空腸十二指腸重積と診断した稀有な1例を経験したので、文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：25歳，男性

主訴：嘔吐，貧血

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1995年3月より嘔吐を主訴に近医を受診し、高度の貧血 (Hb 5.3g/dl) を指摘され、胃潰瘍として内服治療を受けていた。1996年1月、再び強い嘔吐をきたし、幽門狭窄の疑いにて当院に紹介された。

入院時現症：身長172cm，体重60kg，眼瞼結膜に貧血を認めず，腹部は平坦で圧痛もなく，腫瘤等の異常所見は明らかではなかった。

入院時血液生化学検査成績：今回の入院時血液検査にて Hb 14.7g/dl と貧血を認めず，生化学検査にも異常所見を認めなかった。

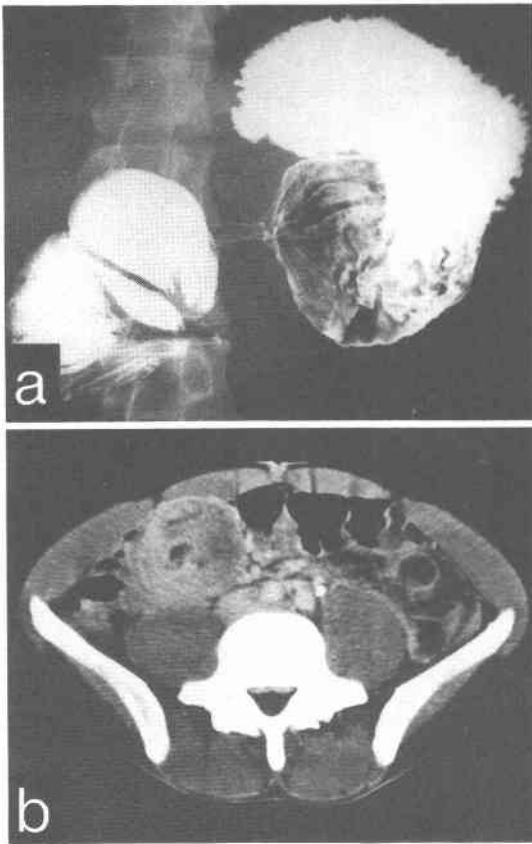
上部消化管造影 X 線検査：幽門前庭部より幽門輪にかけて粘膜面の滑らかな狭窄を認めるとともに，十二指腸2nd portion の拡張を認めた (Fig. 1a)。

上部消化管内視鏡検査：あたかも S 状結腸軸捻転の内視鏡像のように，胃粘膜が幽門前庭部から十二指腸内へ巻き込まれ，幽門部において狭窄をきたしていたが，内視鏡は容易に通過した。幽門輪および十二指腸球部は観察できず，十二指腸2nd portion に，病変は明らかではなかった。

腹部超音波検査および腹部 CT 検査：腹部超音波検査では，内部に数個の無エコー領域を認める直径約5.5 cm 大の充実性腫瘤を認めた。腹部 CT 検査でも直径約5cm の腫瘤が認められ，内部には比較的境界明瞭な低吸収域が存在し，腫瘤内部の嚢胞性変化と考えられた (Fig. 1b)。

臨床経過：腹部超音波および CT 検査によって後腹

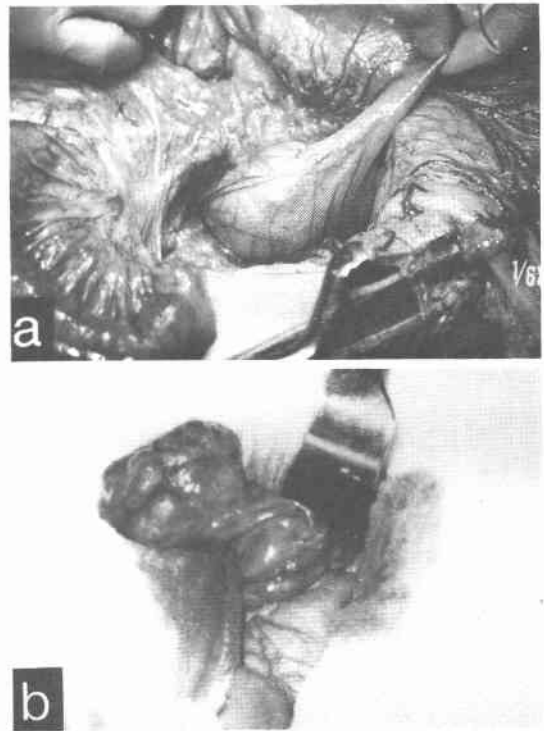
Fig. 1 (a) Upper gastrointestinal series showed the constrictive pyloric stenosis and dilatation of the duodenum. (b) Abdominal CT showed the solid mass with small cystic lesions in it.



膜腫瘍の疑いもたれ、手術を前提としてその他一般検査を進めていたところ、2月15日、突然に大量の下血をきたした。大腸内視鏡検査を施行したが出血源は不明であり、Hb 7.2g/dl と貧血が進行したため、2月17日、腹部血管造影検査を施行した。しかし、腫瘍濃染、動脈瘤あるいは extravasation などを認めず出血源は不明であった。保存的治療を行ったが下血が持続したため、2月18日、後腹膜腫瘍消化管穿破を疑い、緊急開腹術を施行した。

手術所見：幽門部および後腹膜に腫瘍などの病変は存在しなかったが、右側に牽引された Treitz 靭帯の肛側の空腸に直径約5cmの腫瘍が嵌頓しており、同時に約10cmに及ぶ空腸が逆行性に十二指腸内に腸重積を起こしていた (Fig. 2a)。腸重積を Treitz 靭帯から十二指腸にわたって用手整復していくと、腫瘍は十二指腸

Fig. 2 Operative findings: (a) At laparotomy, an intraluminal mass was palpable just distal to the ligament of Treitz. (b) At duodenotomy, the leading tumor was revealed to arise from the first portion of the duodenum with a broad mucosal pedicle.



腸球部にまでもどった (Fig. 2b)。すなわち、十二指腸球部後壁の粘膜下に発生した腫瘍が、著しい球部の粘膜脱をきたしながらポリープ状に Treitz 靭帯を越えて空腸にまで達し、この腫瘍が先進部となって逆行性に空腸十二指腸型 (jejunoduodenal type) の腸重積をきたしたことが判明した (Fig. 3)。そして、重積腸管の循環障害は軽度であり、出血源はこの腫瘍であると考えられたため、十二指腸球部前壁を切開し、ポリープ状腫瘍の球部後壁の筋層を含めて腫瘍を摘出した。

切除標本および病理組織所見：摘出された腫瘍は、大きさ5.5×5.0×3.5cmであり、十二指腸粘膜に覆われた表面は脳回状を呈しており、頂部に出血部位と思われるびらんを認めた。病理組織では、Brunner 腺小葉の過形成組織のほか、平滑筋組織を含む線維性結合組織が不規則に入り込んでおり、中心部には囊胞状の腔の形成を示す部位も見られ、Brunner 腺過誤腫と診断された (Fig. 4)。

Fig. 3 The diagram of the operative findings.

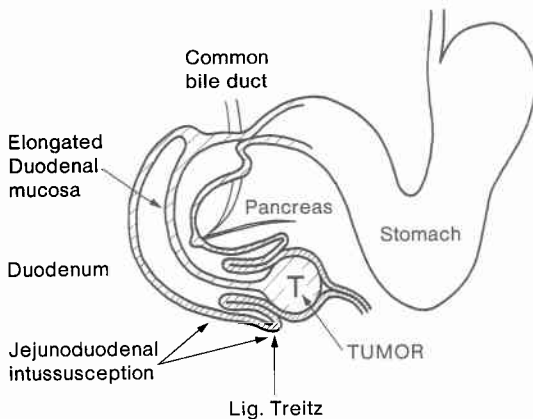


Fig. 4 Microscopic finding showed groups of Brunner-type glands without atypia, separated by smooth muscle fibers. Glandular cystic formations were observed.



考 察

十二指腸 Brunner 腺腫は、十二指腸良性腫瘍の中では31%と最も頻度が高い²⁾が、疾患そのものは比較的まれであり、本邦では92年までに五井ら³⁾が197例を渉猟しているに過ぎない。それによると臨床症状は特有のものではなく、腹痛33%、不定愁訴29%、消化管出血26%、嘔吐6%、無症状21%と述べられている。これ

らのうち、腹痛、嘔吐などの閉塞症状は、腫瘍の大きさによると思われるが、十二指腸 Brunner 腺腫は血管に富むためか、消化管出血は大きさ12mmと比較的小さなものでも報告されている⁴⁾。

組織学的には、Brunner 腺腫は真の腺腫ではなく、過形成と過誤腫に分類されており⁵⁾、本症例は、結合組織や平滑筋組織を含んでおり過誤腫と診断された。この病理組織学的特徴は、超音波検査およびCT検査において、腫瘍内部の嚢胞性変化として特徴づけることができる⁶⁾。

Brunner 腺腫の発生部位および大きさに関しては、五井ら³⁾による検討によっても、Brunner 腺腫の解剖学的な分布に一致して、その91%が球部に発生し、大きさも2cm以下57%、4cm以下86%であることが多い。このため、近年の内視鏡治療の進歩につれて、超音波内視鏡による診断、内視鏡的ポリペクトミーによる診断および治療の報告例が増加し、さらに腹腔鏡による治療の試み⁷⁾も報告されている。しかし、開腹術などいずれの治療法でも、再発および悪性化は見られておらず、予後良好⁸⁾な疾患である。

本症例は、腫瘍が十二指腸球部に発生したにもかかわらず、消化管造影検査および内視鏡検査では診断すら困難であった。これは、腫瘍が直径5.5cmと巨大であったばかりではなく、球部からポリープ状に Treitz 靭帯を越えるまで牽引された腫瘍が、蠕動との力関係によって⁹⁾、逆行性に空腸十二指腸型の腸重積をきたすという、極めて特異な病態¹⁰⁾をとったためである。すなわち、本来は先進部腫瘍とともに十二指腸を空腸内に重積させるように蠕動が働くところが、十二指腸が後腹膜に固定されているために、逆蠕動を引き起こして近位空腸が十二指腸内に重積したものと考えられる。さらに、幽門部粘膜の巻き込み像は、先進腫瘍による球部粘膜の高度の牽引に伴う随伴所見であり、これは胃十二指腸重積に至る前段階であったとも考えられる。また、臨床症状についても、経過中に引き起こされた腸重積が十二指腸内では部分的あるいは不完全⁹⁾であったために、あるいは、先進部が空腸におよんでも腸重積が逆蠕動でおこった結果、おそらく自然整復¹¹⁾を繰り返したために、年余にわたって間欠的に軽い閉塞症状をきたすのみで経過したものと考えられる。しかし、今回は完全な腸重積をおこし閉塞症状をきたしたうえ、腫瘍の先進部から出血をきたし、大量下血を発症したものと考えられる。

一般に、十二指腸は後腹膜に固定されているという

Fig. 5 A 2-hour barium meal film demonstrated the image of the jejunoduodenal intussusception, intraluminal mass (▲), coiled spring appearance (△), foreshortening and dilatation of the duodenum (↑).



解剖学的な特徴および、先進部となる腫瘍の発生頻度が低いことなどによって、その腸重積はまれであり、そのうち自由度の大きい胃幽門部が関与するものを除くと、十二指腸の腸重積の病型としては、十二指腸十二指腸型、十二指腸空腸型、空腸十二指腸型が考えられる。そしてこれらの病型は、臨床的な特徴と関連づけることができる。すなわち、先進部が乳頭部の近傍に発生した場合^{12)~14)}、および腸回転異常など Treitz 靱帯の形成不全¹³⁾¹⁵⁾によって十二指腸が高度の可動性を示し胆道系の偏位をきたしやすい場合などは、順蠕動性に十二指腸空腸型の腸重積をきたし、黄疸など胆道狭窄症状を呈すると考えられる。一方、本症例のように腸重積先進部の腫瘍が球部から発生しているうえ、十二指腸が可動性を示さず、先進部に逆行性の牽引力が加わる場合¹⁶⁾には、空腸十二指腸型の腸重積をきたし、胆道狭窄症状をきたしにくいものと考えられる。十二指腸十二指腸型の腸重積は、これらの不完全な移行型であり、臨床的にも軽い閉塞症状を呈するのみであると考えられる。

十二指腸空腸重積の症例報告は、海外文献では散見

され、Brunner 腺過誤腫によるもの¹⁷⁾¹⁸⁾のほか、脂肪腫、癌、憩室、villous adenoma、カルチノイド、duplication cyst など⁸⁾¹²⁾¹⁵⁾を原因とするものが報告されているが、本邦における十二指腸空腸重積の症例報告は、検索しえた限りでは、Brunner 腺腫による1例¹⁾を認めるのみであった。一方、空腸十二指腸重積に関しては、duplication cyst によるもののほか、バルーン付胃瘻チューブの空腸への迷入に起因する症例¹⁶⁾が報告されており、本症例と全く同様の発症機序が推測される。

本症例において、retrospective に画像を検討すると、十二指腸球部の大きな粘膜病変の存在を示唆する特異な幽門粘膜の巻き込み像のほか、上部消化管造影2時間後の X 線画像において、十二指腸球部から発生した直径5.5cm のポリープ状腫瘍が、Treitz 靱帯を越えて空腸に先進し、近位空腸が十二指腸3rd portion に逆行性に腸重積をきたしている様相が早期に診断可能であった (Fig. 5)。これは、空腸十二指腸型ながら、十二指腸の拡張、短縮、および先進する腫瘤陰影と3rd portion にて重積する腸管内腔による coiled spring sign を認め、十二指腸空腸重積の典型的な消化管造影 X 線画像¹⁷⁾と同様であった。また、十二指腸2nd portion を縦走する、牽引された球部粘膜による縦襞もわずかに確認できた。はたして、診断が困難なときは、画像を含め各種検査結果を詳しく再検討することが肝要だと、深く再認識させられた。

文 献

- 1) 上田淳一, 木村成里, 波多野悦朗ほか: 腸重積を合併した十二指腸 Brunner 腺腫の一症例. 和歌山赤十字病医誌 9: 93-98, 1991
- 2) 田中 進, 福富久之, 中村耕三ほか: 十二指腸隆起性病変の内視鏡診断. 消内視鏡の進歩 8: 100-103, 1976
- 3) 五井孝憲, 宮本康二, 二村直樹ほか: 十二指腸 Brunner 腺腫の一例と本邦報告例の検討. 岐阜県医師会医誌 6: 299-304, 1992
- 4) 鯉淵幸生, 水口滋之, 勅使河原修ほか: 貧血を初症状として発見された Brunner 腺腫瘍の二例. 北関東医 43: 575-579, 1993
- 5) 小林省二, 大森正樹, 三木 洋ほか: 十二指腸 Brunner 腺のポリープ状過誤腫(いわゆる Brunner 腺腫)の一例. 病理と臨 2: 1506-1511, 1984
- 6) 津田 恭, 吉井町子, 友田 要ほか: 十二指腸 Brunner 腺腫の一例. 臨放線 36: 627-630, 1991
- 7) 志村英生, 富永雅也, 永井英司ほか: 巨大 Brunner 腺腫の一例. 胃と腸 28: 671-676, 1993
- 8) Levine JA, Burgart LJ, Batts KP et al: Brunner's gland hamartomas: Clinical presentation

- and pathological features of 27 cases. *Am J Gastroenterol* 90 : 290—294, 1995
- 9) Lempke RE: Intussusception of the duodenum: Report of the case due to the Brunner's gland hyperplasia. *Ann Surg* 150 : 160—166, 1959
 - 10) Lin F, Setya V, Signor W: Gastroduodenal intussusception secondary to a gastric lipoma: A case report and review of the literature. *Am Surg* 58 : 772—774, 1992
 - 11) Norton KI, Luhmann KC, Dolgin SE: Retrograde jejunal-duodenal intussusception associated with a jejunal duplication cyst in a newborn. *Pediatr Radiol* 23 : 360—361, 1993
 - 12) Taams J, Huizinga WKJ, Somers SR: The wandering ampulla-duodenal jejunal intussusception of a carcinoid tumour with displacement of the bile duct to the left iliac fossa. *S Afr J Surg* 30 : 153—155, 1992
 - 13) Vinnicombe S, Grundy A: Obstructive jaundice secondary to an intussuscepting duodenal villous adenoma. *Clin Radiol* 46 : 63—65, 1992
 - 14) Schnedl WJ, Reisinger EC, Lipp RW: Biliary obstruction due to duodenojejunal intussusception in Peutz-Jeghers syndrome. *J Clin Gastroenterol* 23 : 220—223, 1996
 - 15) Jennings BS, Doerr RJ: Duodenal lipoma causing intussusception. *Surgery* 105 : 560—563, 1989
 - 16) Ciaccia D, Quigley RL, Shami PJ: A case of retrograde jejuno-duodenal intussusception caused by a feeding gastrostomy tube. *Nutr Clin Pract* 9 : 18—21, 1994
 - 17) Rieth KG, Abbott GF, Gray G: Duodenal intussusception secondary to Brunner's gland hamartoma. *Gastrointest Radiol* 2 : 13—16, 1977
 - 18) Chuang JH, Chen WJ: Duodenojejunal intussusception secondary to hamartomatous polyp of Brunner's glands. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 13 : 96—100, 1991

A Case of Brunner's Gland Hamartoma Developing Jejunoduodenal Intussusception and Profuse Melena

Yoshimitsu Kojima*, Masato Fujisaki, Tetsuaki Kameyama,
Shinobu Hirahata, Dai Maeda, Hirotohi Hasegawa,
Masahisa Matsumoto and Satoshi Nakamura*
Department of Surgery, Ashikaga Red Cross Hospital

*Second Department of Surgery, Hamamatsu University School of Medicine

A 25-year-old man complaining of emesis and anemia was referred to our hospital on suspicion of pyloric stenosis. Endoscopic examination revealed the stenosis of the pylorus, but the endoscope passed through it without difficulty. A retroperitoneal tumor was suspected based on the abdominal CT scan findings, a definite diagnosis was impossible and while undergoing other examinations, the patient unexpectedly developed acute profuse melena. Angiography revealed no significant source of bleeding, and his anemia progressed. Finally, exploratory laparotomy was performed. A polypoid tumor with a maximum diameter of 5 cm was found to arise from the posterior aspect of the first portion of the duodenum to distal to the ligament of Treitz and causing retrograde jejuno-duodenal intussusception with the proximal jejunum into the third portion of the duodenum. The source of the hemorrhage was the leading tumor and the tumor was histologically diagnosed as a Brunner's gland hamartoma. Anatomically the intussusception of the duodenum is quite rare. Classification of duodenal intussusception, the mechanism of it and the X-ray findings were discussed.

Reprint requests: Yoshimitsu Kojima Second Department of Surgery, Hamamatsu University School of Medicine
3600 Handa-cho, Hamamatsu-shi, 431-31 JAPAN