

小腸 myoepithelial hamartoma の 1 例

本島総合病院外科¹⁾, 群馬大学第 1 外科²⁾

篠田 康夫¹⁾²⁾ 笹口 政利¹⁾²⁾ 山田 修司¹⁾

本島 悌司¹⁾ 長町 幸雄²⁾

小腸良性腫瘍の中でも特にまれな myoepithelial hamartoma の 1 例を経験したので報告する。症例は70歳の男性。上腹部痛を主訴に来院した。同部に強い圧痛を認めたが、筋性防御は認めなかった。腹部 CT 検査で右上腹部に小腸壁のターゲット状肥厚を認め、腸重積症と診断し手術を施行した。手術所見では、トライツ韌帯より80cmの空腸が40cmにわたり陥入して重積をきたしていた。手動的に整復した後、先進部に4.0×2.5×2.5cmの腫瘤を触知したため、空腸部分切除術を施行した。病理組織学的には、内輪筋層内に平滑筋の増殖と混在した腺管の増生を認め、myoepithelial hamartoma と診断した。経過良好にて術後第21病日に退院した。成人の腸重積症に対しては小腸腫瘍を疑い、手術に踏み切るタイミングが重要である。

Key words: myoepithelial hamartoma, small intestinal tumor, intussusception

はじめに

消化管腫瘍の中で、小腸良性腫瘍はまれな疾患である。その中でも極めてまれである小腸 myoepithelial hamartoma の 1 例を経験した。本症例の特徴は腫重積で発症し、腫瘍の病理組織所見は腺組織と平滑筋組織の増生であった。臨床的および病理学的に興味深い疾患であり、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：70歳、男性

主訴：上腹部痛、腹部膨満感

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

開腹既往なし。

現病歴：1995年5月上旬に上腹部痛、腹部膨満感が出現。5月17日に当院を受診したが、腹部症状が軽微であったため、外来通院で経過観察とした。しかし、腹痛持続するため、5月20日に精査加療の目的で入院となった。

入院時現症：身長160cm、体重55kg、血圧150/70 mmHg、脈拍80/min 整。眼瞼結膜に貧血はなく、眼球結膜に黄染を認めなかった。腹部所見は上腹部に圧痛を認めたが、筋性防御は認めなかった。

入院時血液検査成績：末梢血、血液生化学的検査で

<1997年9月9日受理>別刷請求先：篠田 康夫
〒371 前橋市昭和町3-39-22 群馬大学医学部第
1外科学教室

は特に異常値を認めず、腫瘍マーカーも正常であった。

腹部単純 X 線写真：5年前より指摘されていた石灰化像の他、少量の小腸ガス像を認めたが、ニボーの形成はなかった。

胃内視鏡検査：表層性胃炎を認めた。

腹部超音波検査：脾門部および臍頭部周囲に石灰化、肝臓および腎臓に嚢胞を認めた。

注腸造影：横行結腸に2個、下行結腸に1個、計3個の数 mm 大のポリープを認める以外、異常所見はなかった。

腹部 CT 検査：5月24日（入院第5病日）に施行。左上腹部～側腹部にかけて小腸壁がターゲット状に肥厚しており、内腔に偏心性隆起を認めた。壁に性病変あるいは内腔への嵌入性病変を思わせ、腸重積症と診断した (Fig. 1)。

典型的なイレウス症状、腹膜炎所見は認めなかったが、保存的治療により上腹部痛、腹部膨満感は改善しなかった。

腹部 CT 検査 (再検)：6月5日 (手術前日) の CT 所見では、左上腹部に存在した小腸の重積を思わせる嵌入性病変は、増大して右下腹部へ移動していた。上部小腸、十二指腸、胃の拡張も進行し、内部に液体と気体を含み air fluid level を形成していた (Fig. 2)。

臨床症状および腹部 CT 所見から小腸腫瘍による腸重積症を強く疑い、翌6月6日に手術を施行した。

手術所見：臍上下にわたる正中切開で開腹。トライ

Fig. 1 On CT of the abdominal region performed on May 24 (the fifth day of hospitalization), thickening of small intestine forming a target-shape protrusion in the center of the cavity was observed in the upper left to lateral region of the abdomen. Since the lesion on the wall or invaginating lesion was suggested, the illness was diagnosed as intussusception.

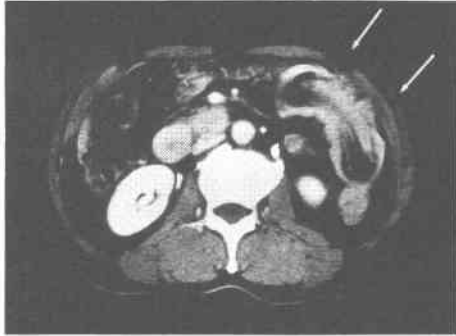
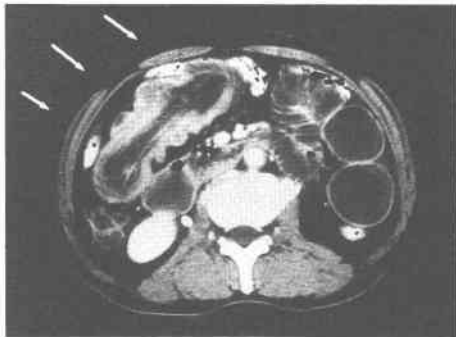


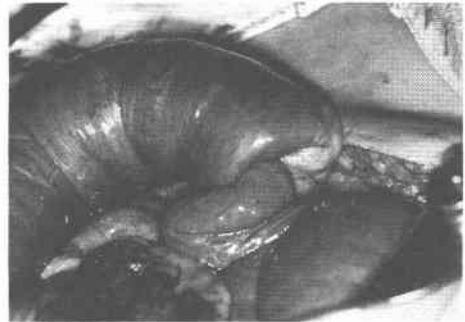
Fig. 2 In the reexamination abdominal CT on June 5 (the day before operation), intussusception of the small intestine in the upper left abdominal region enlarged and moved toward the lower right abdominal region. Distention of the upper small intestine, duodenum and stomach progressed, and liquid and gas accumulated forming an air-fluid level.



ツ靱帯より80cmの部位の空腸が、40cmにわたり空腸内に嵌入して重積をおこしていた。用手的に整復した後、先進部の腸管内腔に鳩卵大の腫瘤を触知したため、腫瘤を含め15cm空腸部分切除術を施行した。術中迅速病理診断は良性であった (**Fig. 3**)。

切除標本：腫瘍は4.0×2.5×2.5cm大で、弾性軟の有茎性の隆起性病変であり、表面にびらん、潰瘍は認めなかった (**Fig. 4a**)。断面では、腫瘍は多嚢胞性構

Fig. 3 By lapalotomy, 40cm of intussusception of the jejunum at 80cm from the ligament of Treitz was found. after manual repositioning, a thumb-head size tumor was palpated in the front portion. A 15cm portion the jejunum including the tumor was resected.



造を呈し、内部は漿液性の液体で満たされていた (**Fig. 4b**)。

病理組織学的所見：粘膜筋板は保たれており、内輪筋層内に平滑筋線維と大小の拡張した腺管の増生がみられ、myoepithelial hamartomaと診断した (**Fig. 5**)。

経過良好で術後第21病日に退院した。

考 察

小腸腫瘍は全消化管腫瘍の2.0~5.0%程度であり、その中で良性腫瘍は1/4~1/3とされている^{1)~3)}。平滑筋腫、脂肪腫、血管腫、腺腫が約70%を占める⁴⁾⁵⁾。過誤腫はさらにその1%に過ぎない極めてまれな腫瘍である⁶⁾。過誤腫は「非腫瘍性の先天的の奇形、あるいは生後の組織発達の際の誤りにより生じる」と定義されている⁶⁾。先天的の奇形は結合織に起こるが、生後の2次的変化は上皮に起こり、過形成から異形成、腫瘍へと進展することが知られている。

病理組織学的特徴は、粘膜下から固有筋層にかけて腺組織と平滑筋組織の増生である。その病態を表現して、adenomyoma, hamartoma, hamartomatous polyp, adenomyomatous hamartoma, myoepithelial hamartomaなどの種々の用語が用いられているが、いまだ明確な分類はなされていない。発生学的には、小腸壁に迷入した異所性膵組織の腫瘍性増殖によると考えられ、heterotopic pancreas (Heinrich 3型)と称されている⁷⁾⁸⁾。消化器系における過誤腫としては、胆嚢に発生するものが知られているが、小腸に発生するものはまれである。病理組織学的、発生学的特徴よ

Fig. 4 a: The tumor in the excised jejunum was 4.0×2.5×2.5cm in size, and was elastic, pediculate and protruding. No erosion or ulceration was found on the surface. b: On a view of the cut surface, the tumor was polycystic and the inside was filled with serous fluid.

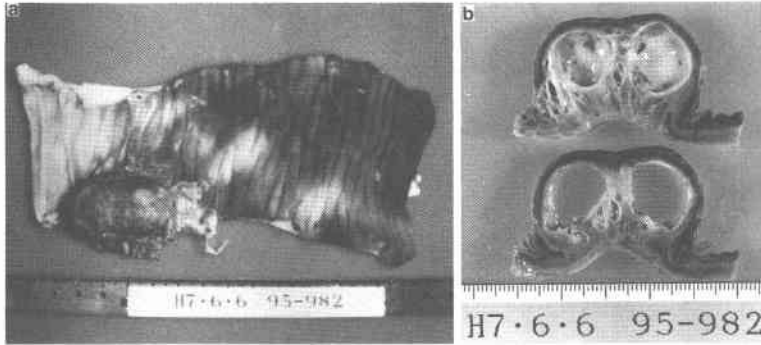


Fig. 5 In the histological study, the muscular layer of mucosa was retained, but growth of smooth muscle fibers and proliferation of large and small dilated ducts were found in the internal circular muscle layer (H.E. stain, ×40).



り、本症例は myoepithelial hamartoma という名称が妥当と考え診断名とした。

このような定義で小腸過誤腫の本邦報告例を集計してみると、検索しえた限りでは自験例を含め33例であった^{3)6)7)9)~27)} (Table 1)。年齢は生後数日から60歳代まで広く分布していて、男女比はほぼ1:1であった。発生部位は空腸と回腸に差はなかった。臨床症状は、1) 腸重積17例、2) 腸閉塞5例、3) 下血4例であった。臨床経過をみると激的な症状を認めたものはない。治療は腫瘍摘出術を行った2症例を除き、全例小腸部分切除術が施行されている。

Myoepithelial hamartoma に限らず小腸腫瘍は、術前診断の困難な疾患である。さらに、病理学的確定診

断は極めて困難である。小腸腫瘍の診断下に開腹した症例は少なく、確定診断が得られないまま開腹し、術中に小腸腫瘍と診断される症例が多数を占める。また、他疾患の手術中に偶然発見される場合もある³⁾。その理由としては、1) 絶対数が少ないこと、2) 無症状であるものも少なくなく、さらに、症状があっても特有の臨床症状を示さないこと、3) 解剖学的位置から術前の検査(小腸二重造影検査、小腸内視鏡検査)が難しいこと¹⁾、などが考えられる。

本症例は腸重積で発症し、保存的治療により上腹部痛、腹部膨満感の改善が認められなかったにもかかわらず、重篤な腸閉塞症状を示さなかった。成人の腸重積症、開腹既往なく保存的治療で軽快しない腸閉塞症、消化管検査で出血源不明の下血などに対しては、悪性腫瘍の可能性も含め小腸腫瘍を鑑別対象疾患の1つとして考え、積極的に手術に踏み切ることが望ましい。

終稿にあたり、病理組織学御指導を頂いた群馬大学第2病理佐野孝昭先生に深謝を申し上げます。

文 献

- 1) 八尾恒良, 日吉雄一, 田中啓二ほか: 最近10年間(1970—1979)の本邦報告例の集計からみた空・回腸腫瘍—II. 良性腫瘍. 胃と腸 16: 1049—1056, 1981
- 2) 渡辺英伸, 岩淵三哉, 岩下明徳ほか: 原発性の空・回腸腫瘍の病理. 胃と腸 16: 943—957, 1981
- 3) 鶴野由佳, 久米川啓, 田中 聡ほか: 空腸過誤腫の1手術例. 日臨外医会誌 54: 446—449, 1993
- 4) 久保俊彰, 吉川和彦, 曾和融生ほか: 小腸良性腫瘍および腫瘍様病変の外科病理. 消外 17: 1470—1478, 1994
- 5) Wilson JM, Melvin DB, Gray G et al: Benign

Table 1 Reported cases of small intestinal hamartoma in Japan

No.	Authors	Age, Sex	Position	Symptom	Size	Histology	Reference
1	Ishida (1971)	6, M	ileum	intussusception	1.0×1.0cm	adenomyomatous hamartoma	9)
2	Uchiyama (1974)	51, F	ileum	intussusception	2.0cm	adenomyomatous hamartoma	10)
3	Anazawa (1975)	12, F	ileum	intussusception	2.0cm	hamartomatous polyp	11)
4	Anazawa (1975)	13, F	jejunum	intussusception	1.3cm	hamartomatous polyp	11)
5	Anazawa (1975)	29, F	ileum	intussusception	3.3cm	hamartomatous polyp	11)
6	Anazawa (1975)	49, F	jejunum	none	1.5cm	adenomyoma	11)
7	Hayashida (1977)	9m, M	ileum	intussusception	little finger's head	adenomyoma	12)
8	Otsuka (1980)	7m, M	jejunum	intussusception	1.2×1.0×1.0cm	adenomyoma	11)
9	Takeuchi (1986)	66, M	jejunum	ileus	thumb's head	adenomyoma	14)
10	Sato (1987)	49, M	ileum	melenia	1.5×1.0×1.0cm	myoepithelial hamartoma	15)
11	Tsuda (1987)	26, M	jejunum	intussusception	9.0cm	angiolipomatous hamartoma	16)
12	Arima (1988)	3d, F	ileum	intussusception	unknown	hamartoma	17)
13	Nagashima (1988)	9d, F	unknown	melenia	unknown	hamartoma	18)
14	Kato (1988)	27, M	jejunum	melenia	3.5×3.0×3.5cm	adenomyomatous hamartoma	19)
15	Okada (1988)	2m, unknown	jejunum	intussusception	unknown	adenomyoma	20)
16	Sano (1988)	2m, F	ileum	intussusception	0.8cm	adenomyoma	21)
17	Sano (1988)	3d, F	jejunum	intussusception	1.0×0.6×0.4cm	adenomyoma	21)
18	Sano (1988)	15d, M	ileum	intussusception	1.0×1.0×1.5cm	adenomyoma	21)
19	Sano (1988)	2m, M	ileum	intussusception	2.4×1.4×1.2cm	adenomyoma	21)
20	Sano (1988)	10m, F	jejunum	histological anatomy	0.8cm	adenomyoma	21)
21	Sano (1988)	2, M	ileum	histological anatomy	0.5cm	adenomyoma	21)
22	Sano (1988)	6, F	jejunum	histological anatomy	1.0cm	adenomyoma	21)
23	Kawada (1989)	60, M	ileum	none	thumb's head	adenomyoma	22)
24	Sugano (1990)	57, F	jejunum	ileus	2.5×2.5×2.0cm	adenomyoma	23)
25	Noguchi (1990)	51d, M	ileum	ileus	1.0cm	adenomyoma	24)
26	Sato (1991)	59, M	jejunum	intussusception	4.0cm	hamartomatous polyp	25)
27	Imamura (1991)	82, M	jejunum	melenia	8.0cm	hamartoma	26)
28	Yoshinaga (1993)	20, M	jejunum	ileus	4.0×2.0×2.0cm	hamartomatous polyp	27)
29	Tsurono (1993)	55, M	jejunum	unknown	2.0×1.6cm	hamartomatous polyp	3)
30	Taniguchi (1994)	21, M	ileum	ileus	7.0×1.5cm	hamartoma	6)
31	Kitagawa (1995)	73, F	ileum	intussusception	3.0×3.0×1.5cm	myoepithelial hamartoma	7)
32	Kitagawa (1995)	1, F	ileum	intussusception	1.3×0.8×0.8cm	myoepithelial hamartoma	7)
33	present case (1997)	70, M	jejunum	intussusception	4.0×2.5×2.5cm	myoepithelial hamartoma	

small bowel tumor. Ann Surg 181 : 247-250, 1975

- 6) 谷口英治, 坂本嗣郎, 打越史洋ほか: 先天性虫垂欠損症を伴った回腸結腸移行部過誤腫の1手術例. 日臨外医会誌 55 : 2059-2063, 1994
- 7) 北川雄一, 大塚光二郎, 玉内登志男ほか: 腸重積にて発症した回腸 myoepithelial hamartoma の2例. 日臨外医会誌 56 : 762-766, 1995
- 8) 谷口英治, 坂本嗣郎: 空腸, 回腸, 盲腸, 結腸, 直腸-腸過誤腫. 西村昭緒, 上銘外喜夫編. 日本臨床, 領域別症候群6, 日本臨床社, 東京, 1994, p389-392
- 9) 石田治雄, 石井勝巳, 横山穰太郎ほか: 小腸過誤腫による腸重積症の1治験例. 日小児外会誌 6 : 537, 1971
- 10) 内山昌則, 鈴木信男, 斉藤 博ほか: 診断が困難で

- あった小腸ポリープの1例, 新潟医学会誌 88: 346, 1974
- 11) 宍沢貞夫, 鈴木正弥, 斉藤波瑠夫ほか: 小腸腫瘤について, 癌の臨 21: 19-27, 1975
- 12) 林田紀和, 渡辺不二夫, 清野隆吉ほか: 腺筋腫による乳児腸重積の1例, 外科 39: 201-203, 1977
- 13) 大塚康吉, 大西正高, 野村修一ほか: 回腸腺筋腫を伴った乳児腸重積の1例, 外科 42: 174-175, 1980
- 14) 竹内教能, 伊藤 久, 渡辺 成ほか: 小腸腺筋腫を合併した結腸脂肪腫の1例, 日本大腸肛門病学会誌 39: 397-402, 1986
- 15) 佐藤輝彦, 鎌野俊紀, 東 昇ほか: 下血を主訴とした小腸過誤腫の1例, 日消外会誌 20: 2655-2657, 1987
- 16) 津田純郎, 今村達也, 桑野常文ほか: 腸重積で発見された空腸 angioliomatous hamartoma の1例, 日消病会誌 84: 822, 1987
- 17) 有馬 透, 久守考司, 安部俊一ほか: 新生児腸重積症の1例, 日小児外会誌 24: 1374, 1988
- 18) 長島真理子, 松下盛行, 石田 清ほか: 下血を主訴とした新生児小腸過誤腫の1例, 日小児外会誌 24: 1530, 1988
- 19) 加藤俊夫, 吉村 平, 北川達士ほか: 大量下血を繰り返し興味ある病理組織像を呈した空腸良性腫瘍の1例, 胃と腸 23: 889-894, 1988
- 20) 岡田代吉, 徳山 昇, 赤嶺普治ほか: 空腸腺筋腫による乳児腸重積症の1例, 日小児外会誌 24: 962, 1988
- 21) 佐野仁勇, 佐々木佳郎, 西 寿治ほか: 小腸腺筋腫 (Adenomyoma) の臨床病理, 小児外科 13: 1525-1535, 1988
- 22) 川田彰得, 塚原祐二: 術中に見出された小腸筋腫の1例, 腹部救急診療の進歩 10: 898-900, 1989
- 23) 菅野 勉, 鎌野俊紀, 内田敬之ほか: イレウス症状を呈した小腸過誤腫の1例, 腹部救急診療の進歩 10: 898-900, 1990
- 24) 野口伸一, 上野孝毅, 久米一弘ほか: 乳児に発症した小腸腺筋腫によるイレウスの1例, 松山赤十字病医誌 15: 129-133, 1990
- 25) 佐藤徹也, 鎌野俊紀, 藤井祐二ほか: 腸重積を呈した小腸腫瘍の1例, 腹部救急診療の進歩 11: 400-402, 1991
- 26) 今井治男, 宇土俊一, 川上孝雄ほか: 小腸ハマルトーマの1例, 日消病会誌 88: 2378, 1991
- 27) 吉永昌雄, 小林達則, 松尾恵輔ほか: 過誤腫性ポリープによる成人腸重積症の1例, 広島医 46: 669-672, 1993

A Case of Small Intestinal Myoepithelial Hamartoma

Yasuo Shinoda¹⁾²⁾, Masatoshi Sasaguchi¹⁾²⁾, Syuji Yamada¹⁾,
Teiji Motojima¹⁾ and Yukio Nagamachi²⁾

¹⁾Department of Surgery, Motojima General Hospital

²⁾First Department of Surgery, Gunma University School of Medicine

A case of myoepithelial hamartoma of the small intestine, which is particularly rare among benign tumors of the small intestine, was observed. The patient was a 70-year-old man. He was examined in this hospital with the chief complaint of upper abdominal pain. On CT of the abdominal region, target-shaped thickening of the small intestine was observed from the upper left to the lateral region of the abdomen, and the illness was diagnosed as intussusception. The symptom was not alleviated by palliative therapy, and progress of intussusception was observed in reexamination by CT. He was diagnosed as having intussusception caused by a tumor in the small intestine and received a laparotomy. A 40-cm intussusception of the jejunum at 80-cm from the ligament of Treitz was found. After manual repositioning, a tumor 4.0 × 2.5 × 2.5 cm in size was palpated in the front portion of the intussusception. A 15-cm length of the jejunum including the tumor was resected. In the histological study, growth of smooth muscle and mixed ductal proliferation were found in the internal circular muscle layer, and the illness was diagnosed as myoepithelial hamartoma. The course after the operation was good, and he was discharged on the 21st day of hospitalization.

Reprint requests: Yasuo Shinoda First Department of Surgery, Gunma University School of Medicine
3-39-22 Showa-machi, Maebashi, 371 JAPAN