

下血を主訴とし腸重積を呈した単発性 Peutz-Jeghers 型空腸過誤腫の1例

屋島総合病院消化器病センター外科

宇高 徹総 堀 堅造 安藤 隆史
辻 和宏 高垣 昌巳 山根 正修

下血を主訴とし、腸重積を呈した単発性 Peutz-Jeghers (P-J) 型空腸過誤腫の1例を経験したので報告する。

症例は47歳の男性。1996年10月2日頃より下血を認め入院となった。小腸造影検査で空腸に腫瘍を認め、1週間後の腹部超音波、CT 検査で空腸に腸重積の所見を認めたが、腹部症状は認めなかった。小腸造影の再検査では腸重積を認めなかった。腸重積を呈した空腸腫瘍と診断して11月26日手術を施行した。トライツ靱帯より50cmの空腸が三筒性の重積をきたしていた。用手的に整復した後、腫瘤を含め20cmの空腸を切除した。摘出標本では、腫瘍は有茎性のポリープで、病理組織学的診断は、P-J型の過誤腫であった。自験例では、過誤腫による無症状の腸重積を起こしては自然に軽快するという興味深い経過をたどっていた。また、本疾患は良性腫瘍であるため腸切除よりは腸切開・ポリープ切除が適切な手術法であると思われた。

Key words: hamartoma of jejunum, bloody stool, intussusception

はじめに

消化管腫瘍の中で、小腸腫瘍は比較的まれな疾患である¹⁾。その中でもまれな単発性 Peutz-Jeghers (以下、P-J) 型空腸過誤腫の1例を経験した。本症例の特徴は、下血を主訴とし、無症状の腸重積を呈したことである。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：47歳、男性

主訴：下血

既往歴：1995年より十二指腸潰瘍で内服治療。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：十二指腸潰瘍で当院通院中、1996年10月2日頃より下血を認め、精査目的にて入院となった。

入院時現症：身長155cm、体重50kg、血圧129/78 mmHg、脈拍84/分・整、体温36.7°C、眼瞼結膜に貧血を認めた。胸部に異常を認めず、腹部は平坦・軟で圧痛は認めなかった。

入院時検査所見：末梢血検査で RBC $3.24 \times 10^3 /$

ml, Hb 8.4g/dl, Hct 28.3%と小球性低色素性貧血を認め、血清鉄も45mg/dlと低値を示した。

小腸二重造影 X 線検査：10月21日の造影ではトライツ靱帯より約40cmの空腸に、大きさ4×3cmの表面が分葉状で凹凸不整な腫瘍を認めた (Fig. 1)。

腹部超音波検査：10月28日の検査では、左腹部の小腸に多重の層構造を示すいわゆる target-like sign が認められた (Fig. 2a)。

Fig. 1 Contrast roentgenography of the small intestine showed a 4×3cm sized tumor.

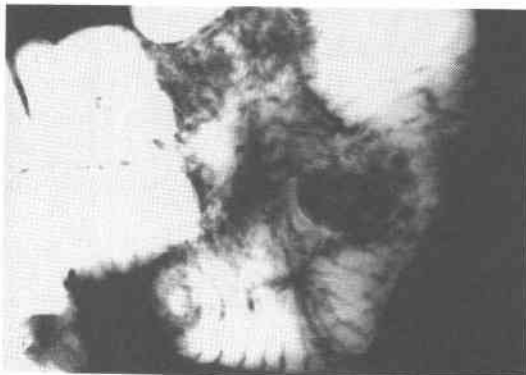
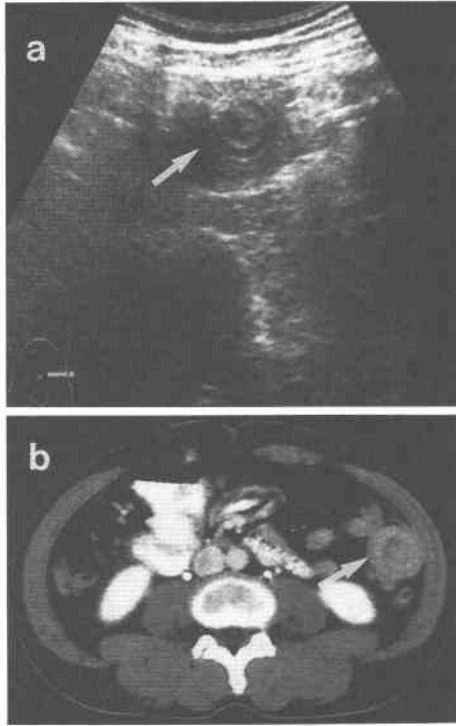


Fig. 2 (a) Abdominal ultrasonography showed a target-like sign (arrow) in the small intestine. (b) Abdominal CT showed a multiple concentric ring mass (arrow), 4cm in diameter, in the left peritoneal cavity.



腹部 computed tomography (以下, CT) 検査: 10月28日の検査では, 腹腔内左側に径約4cmの同心円状層構造を呈する腸管を認めた (Fig. 2b).

腹部超音波検査, 腹部 CT 検査の結果, 空腸腫瘍による腸重積と診断したが, 腹痛もなく無症状であったため, 経過観察し11月5日に小腸二重造影 X 線検査の再検を行った。

小腸二重造影 X 線検査 (再検): トライツ靱帯より約40cmの空腸に腫瘍を認めたが, 経過障害がなく, また, 腸重積も認めなかった (Fig. 3)。

腹部血管造影 X 線検査: 小腸に径3cmの腫瘍濃染像を認めた。

以上の経過より, 腸重積を呈した空腸腫瘍の診断で11月26日手術を施行した。

手術所見: 上腹部正中切開で開腹すると, トライツ靱帯より約50cm 肛門側に空腸が50cm にわたり嵌入して三筒性の重積を来していた (Fig. 4)。用手的に整復した後, トライツ靱帯より70cmの先進部に4.5×

Fig. 3 Re-examination of contrast roentgenography of the small intestine with a long tube showed good passage and no intussusception of the small intestine.

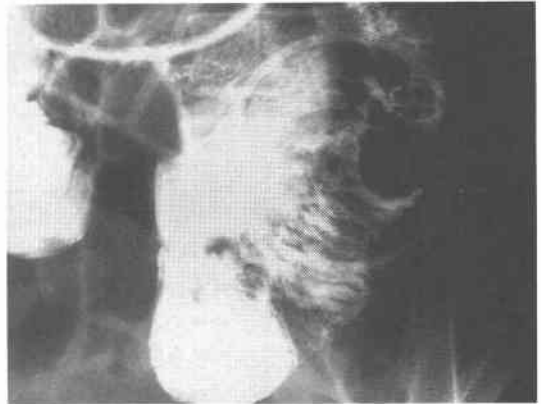


Fig. 4 A 50cm intussusception of the jejunums (arrows), 50cm from the ligament of Treitz, was found.



3.5cmの腫瘍を触知した。腫瘍を含め20cmの空腸を切除し, 端々吻合を行った。

摘出標本: 3.5×3.5×2.0cmの有茎性の隆起性病変であり, 表面は粗大結節状であった (Fig. 5)。

病理組織学的所見: 腫瘍は粘膜筋板の分枝が樹枝状に増生し, 異型のない小腸粘膜の過形成を伴う P-J 型の hamartomatous polyp であった (Fig. 6)。

本患者は口唇, 口腔粘膜, 指趾末端の色素沈着を欠き, 遺伝性も認められない P-J 型ポリープであった。術後経過良好にて術後18日目に退院した。

考 察

Gannon ら²⁾は病理学的には P-J 症候群のポリープであるが, 皮膚の色素沈着と家族歴を伴わない P-J 型ポリープ例を報告した。P-J 症候群は, 本邦ではすでに

Fig. 5 Macroscopic findings of the resected specimen showed a pedunculated tumor with a lobulated head, 3.5×3.5×2.0cm in size.

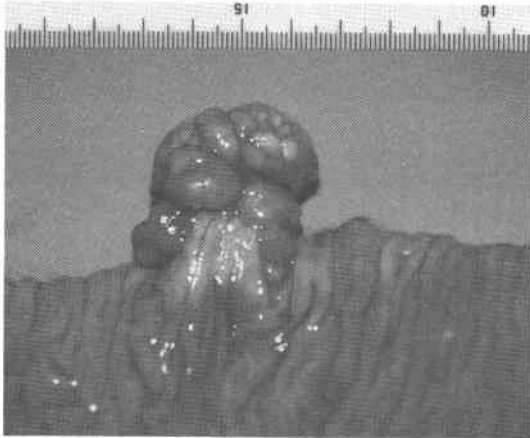
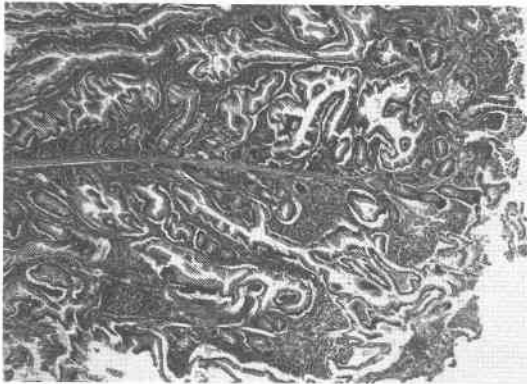


Fig. 6 In the histological study, branches of the lamina muscularis mucosa growing in a dendritic form were covered with hyperplastic mucosa showing no heteromorphism. Hematoxylin-eosin staining (×40).



300例以上の報告例がなされているが³⁾、自験例のような色素沈着や家族歴のないP-J型ポリープの報告はまれである^{4)~12)}。過誤腫を含め小腸腫瘍のX線学的診断は、合併症、すなわち腸重積、腸閉塞あるいは腫瘍が触知される場合以外には困難な場合が多い。小腸の造影検査では、空腸、回腸の場合は、ゾンデ法による小腸造影が有用で、十二指腸の場合は低緊張性十二指腸造影が有用である⁷⁾¹³⁾。自験例では、術前にゾンデ法による小腸造影で空腸腫瘍の局在診断がなされた。その後の腹部超音波、CT検査で同心円状層構造を呈した腸管を認め腸重積と診断したが、腹部症状が全くなく

普通に食事もできていたため経過観察とした。再検査の小腸造影では通過障害もなく、また、腸重積の所見も認められないため腸重積が自然に解除されたと判断した。しかし、手術時には三筒性の重積を認め、腸重積を起こしては自然に軽快するという興味深い経過をたどっていた。腸重積は腸蠕動の亢進で惹起されると同時に、自然にしかも急速に解除されることが多く、比較的緩徐な経過をたどって、急性腹症の型をとらないことが多いとされているため⁶⁾、自験例のように腸重積を起こしても無症状であったと考えられた。

以上より、下血の原因として、腫瘍の圧迫壊死、囊腫様変化などによる出血のみならず、繰り返す腸重積による腸管の循環障害と壊死による出血の可能性が考えられた。自験例のごとく腹部症状、腹部腫瘍を認めず、下血を主訴とし上下部消化管の検査で異常を認めないときは、小腸病変の存在の可能性を強く念頭に置いて、積極的に小腸を検索する必要がある。小腸病変の検索には、ゾンデ法による小腸造影が最も普及した優れた検査法であるが、腹部超音波、CT検査も有用で、時には自験例のごとく腹部血管造影も必要と思われた。

本疾患は腫瘍による腸重積に起因する腸閉塞、出血などの合併症のためにしばしば手術を要する場合があるが、腫瘍は時に癌化を認めるものの^{9)~11)}ほとんどが良性腫瘍であるためできるだけ縮小手術を施行すべきである。自験例では、腫瘍を含め20cmの空腸を部分切除したが、術後診断で有茎性の過誤腫であったと考えると腸切除よりは腸切開・ポリープ切除が適切な手術法であると思われた。また、小腸過誤腫は八重樫ら¹⁴⁾によると多発することがあるため、術中の念入りな小腸の触診はもとより、小腸切開部から内視鏡を挿入して全小腸を観察したり、内視鏡的ポリペクトミーを行うため術中小腸内視鏡検査は是非とも施行すべきである。自験例のような色素沈着や家族歴のないP-J型ポリープにおいてポリープの癌化^{9)~11)}、他臓器癌の合併¹¹⁾、ポリープの増大傾向¹²⁾などの報告がみられ、消化器のみならず悪性腫瘍全体を対象とした経過観察が重要である。

なお、本論文の要旨は、第51回日本消化器外科学会総会(東京)において発表した。

文 献

- 1) 沢田俊夫, 武藤徹一郎, 草間 悟: 原発性小腸腫瘍. 消外 4: 499-505, 1981
- 2) Gannon PG, Dahlin DC, Bartholomew LG et al:

- Polypoid glandular tumors of the small intestine. *Surg Gynecol Obstet* 114 : 666—672, 1962
- 3) 八重樫寛治, 宇都宮譲二 : Peutz-Jeghers 症候群の natural history とその治療. *最新医* 36 : 134—142, 1981
 - 4) Bracke PG, Degryse HR, Goovaerts GC et al : Polypoid hamartoma of the jejunum. *Gastrointest Radiol* 16 : 113—114, 1991
 - 5) Spjut HJ, Helgason AH, Trabanino JG II : Jejunitis cystica profunda in a hamartomatous polyp : Report of a case. *Am J Surg Pathol* 11 : 328—332, 1987
 - 6) 山田由美子, 村田育夫, 今西建夫ほか : 空腸過誤腫性ポリープの1例. *長崎医学会誌* 64 : 171—174, 1989
 - 7) 田中雄一, 瀬戸泰士, 花岡農夫ほか : Peutz-Jeghers 型過誤腫性小腸ポリープの1例. *臨外* 49 : 779—782, 1994
 - 8) 石川 真, 沢田 傑, 宮田知幸ほか : 腸重積症にて発見された不完全型 Peutz-Jeghers 症候群の1例. *日臨外医学会誌* 58 : 149—152, 1997
 - 9) Aneiros J, Matamala M, Moral RG et al : Hamartomatous solitary polyp with malignant progression in the jejunum : A histochemical and immunohistochemical study by light and electron microscopy. *Acta Pathol Jpn* 38 : 1031—1040, 1988
 - 10) 関英一郎, 前川勝治郎, 片見厚夫ほか : 胃および十二指腸ポリープに癌化を認めた不完全型 Peutz-Jeghers 症候群の1例. *埼玉医学会誌* 28 : 147—154, 1994
 - 11) 斉藤雅之, 綿引 元, 山本英明ほか : 癌化を認めた孤在性空腸過誤腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 37 : 1897—1905, 1995
 - 12) 宗清正紀, 井上幹夫, 守田則一ほか : 経過中にポリープの増大を認めた十二指腸の不完全型 Peutz-Jeghers 症候群の1例. *福岡大医紀* 20 : 177—183, 1993
 - 13) 春日井博志, 竜田正晴, 奥田 茂 : 小腸ポリープ. *日臨* 49 : 2870—2874, 1991
 - 14) 八重樫寛治, 三島好雄 : Peutz-Jeghers 症候群. *消化器科* 1 : 736—745, 1984

A Case of Solitary Peutz-Jeghers Type Hamartoma of the Jejunum with Bloody Stool and Intussusception

Tetsunobu Udaka, Kenzo Hori, Takashi Andou, Kazuhiro Tsuji,
Masami Takagaki and Masaomi Yamane

Department of Surgery, Gastroenterological Center, Yashima General Hospital

A case of Peutz-Jeghers type solitary hamartoma of the jejunum with bloody stool and intussusception is reported. The patient was a 47-year-old man. He was examined in our hospital because of a chief complaint of bloody stool on October 2, 1996. Contrast roentgenography of the small intestine revealed a tumor in the jejunum. One week later, abdominal ultrasonography and CT showed target-shaped thickening of the small intestine suggesting intussusception of the small intestine. However, there were no symptoms in the abdomen. Reexamination by contrast roentgenography of the small intestine showed good passage and no intussusception of the small intestine. He was diagnosed as having intussusception caused by a tumor in the jejunum and received an operation on November 26. Intussusception of the jejunum, 50 cm from the ligament of Treitz, was found. After manual repositioning, a 20-cm length of the jejunum including the tumor was resected. The resected specimen showed a pedunculated tumor with a lobulated head. The pathological diagnosis was Peutz-Jeghers type hamartoma. Our case showed an interesting course that an asymptomatic intussusception caused by hamartoma naturally improved. As hamartomas are benign, jejunotomy and polypectomy are considered to be better method than resection of the jejunum.

Reprint requests: Tetsunobu Udaka Department of Surgery, Mitoya General Hospital
708 Himehama Toyohama-cho, Mitogo-gun, Kagawa, 769-1601 JAPAN