

腸重積にて発症した虫垂粘液嚢胞腺腫の1例

豊橋市民病院外科・肛門科

柴田 佳久 深谷 昌秀

症例は50歳の男性。腹痛を主訴に内科を受診し軽度腸閉塞の診断にて治療され改善したが、その後再度腸閉塞症状にて入院。腸重積も疑われたが検査では確認されなかった。大腸 X-p, 大腸内視鏡, CT 検査にて虫垂腫瘍の術前診断の下に開腹術を行った。回盲部から上行結腸は固定が緩く、虫垂粘液腫瘍の盲腸内重積の術中診断の下に回盲部切除術を施行した。摘出標本の病理組織学的検査で虫垂粘液嚢胞腺腫と診断された。

虫垂粘液嚢胞腺腫による腸重積症は報告がまれであり、今後術前診断する上でも興味あるものと考えられたので報告する。

はじめに

虫垂炎や腫瘍触知で発症することの多い虫垂嚢胞腺腫はまれな疾患である。さらに、虫垂粘液嚢腫による腸重積の報告は少ない。今回、腸重積によるイレウス症状にて発症した虫垂粘液嚢胞腺腫の1例を報告する。

症 例

患者：50歳，男性

主訴：腹痛

既往歴：肝機能障害

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：平成10年11月初旬腹痛にて内科を受診し軽度腸閉塞症疑いにて処置され外来通院となった。その後いったん改善したが、11月29日より再び強度腹痛を訴え、腸閉塞症の診断にて入院となった。イレウス管を挿入し、保存的治療にて症状・腹部所見が改善したため、消化管精査が行われ虫垂腫瘍の診断にて手術目的で外科へ紹介された。

入院時現症：貧血黄疸は認めなかった。腹部は膨満していたが軟で、腹膜刺激症状はみられず、腫瘍も触知しなかった。

入院時血液生化学検査：異常は認めず、CEA などの腫瘍マーカーも正常であった。

腹部単純 X 線所見：腹痛を訴えた11月11日の腹部 X 線写真では小腸ガス像と鏡面像を認めた。再度腹痛がみられ入院した12月1日の X 線写真は、やはり腸閉

塞の像で11月11日に比べ腸管拡張など所見は著しくなっていた。どちらにも大腸ガス像は見られなかった。

小腸造影所見：イレウス管からの小腸造影では回腸末端まで小腸は拡張していた。この時、大腸への造影剤の流入はみられなかった。

腹部 CT 所見：右下腹部に瓢箪型をした cystic lesion を認め、壁は造影されたが壁の肥厚や不整はみられず石灰化も見られなかった。また、病変の肛門側では外側に浮腫状の腸管壁が折り重なるようにみられ肛門側腸管内への嵌入・重積を思わせた (Fig. 1)。以上より、回腸末端から盲腸付近の腫瘍病変の存在と腸重積症を疑い、続いて大腸 X 線検査を行った。

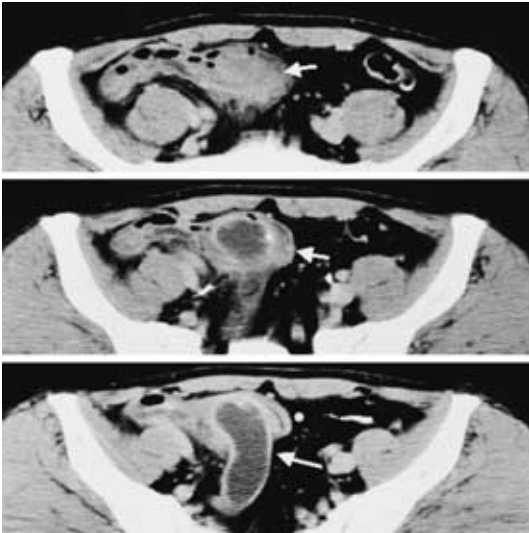
大腸 X 線所見：この時点では造影剤は小腸へも逆流し明かな腸重積像は確認できなかった。検査中にかけた圧にて解除されたと思われた。また、盲腸底部に粘膜下腫瘍様の陰影欠損を認めた。虫垂は造影されなかった (Fig. 2)。

大腸内視鏡所見：盲腸底部に虫垂開口部が中心と思われる粘膜下腫瘍様の所見を認めた。内視鏡検査中に粘液の漏出は観察されなかった (Fig. 2)。生検では group 2 であった。以上の所見から虫垂腫瘍を疑い平成10年12月17日手術を施行した。

手術所見：正中切開にて開腹すると腹水はなく、虫垂は腫大し触診にて硬い腫瘍を根部に認めたが壁外への腫瘍の露出はなかった。盲腸から上行結腸は浮腫状であったが、回腸に炎症性変化を認めなかった。盲腸から上行結腸にかけての後腹膜の固定は緩く、剥離操作なしに容易に創外へ脱出した。そのため虫垂腫瘍を先進部として腸重積を起こすことも容易と思われた。

術前検査と合わせ虫垂切除のみでは腫瘍の切除は不可能であり、また悪性との鑑別もつかないため、2群リンパ節郭清を伴う回盲部切除術を行った。肝・腹膜などへの転移はなかった。

Fig. 1 Abdominal enhanced computed tomography revealed a low density cystic mass () with a thin wall which was enhanced in the ileocecal region, and that's lesion was seemed to be intussuscepted (*)



摘出標本：5.5×3cm 大の虫垂で、虫垂根部は全周性に壁が肥厚し内腔は閉塞していた。虫垂内腔には粘液の貯留がみられ、体部から底部にかけての粘膜表面は白色調であったが隆起性病変や潰瘍はみられなかった。他に盲腸や回腸には異常所見はなかった(Fig. 3)。

病理組織学的所見：虫垂は拡張状で粘液の貯留がみられた。虫垂壁には粘液性上皮が嚢胞壁を被覆し、また円柱上皮が一部にみられ乳頭状配列をしている。上皮に増殖像と中等度の異型性をみるが浸潤像はなく、虫垂粘液嚢胞腺腫と診断された(Fig. 3)。

術後経過は良好で術後12日で退院した。術後1年10か月の現在腹膜偽粘液腫などの再発所見もなく外来通院中である。

考 察

虫垂粘液嚢腫は、剖検の0.07から0.4%に、また虫垂切除症例の0.08から0.4%にみられる比較のまれな疾患である¹⁾²⁾。虫垂粘液嚢腫は、組織学的に過形成、粘液嚢胞腺腫、粘液嚢胞腺癌に分類されている³⁾⁴⁾。粘液嚢胞腺腫の診断は、組織学的に腫瘍性粘液上皮がみられ一部で乳頭状構造を呈することが重要である。本邦では近年報告例が増え⁵⁾⁶⁾、我々の検索では自験例を含め57例が報告されている。年齢は26～89歳と幅広いが45歳以上に多く、男女比は19：38で女性に多い傾向がある。主症状は腹痛21例(36.8%)や腹部腫瘤の触知19例(33.3%)であり、急性腹症や回盲部腫瘤として手術

Fig. 2 a : The barium enema study demonstrated a smooth hemispherical defect which resembled the submucosal tumor of the cecum, and could not reveal the appendix.
b : Colonoscopy demonstrated a submucosal tumor at the bottom of the cecum.

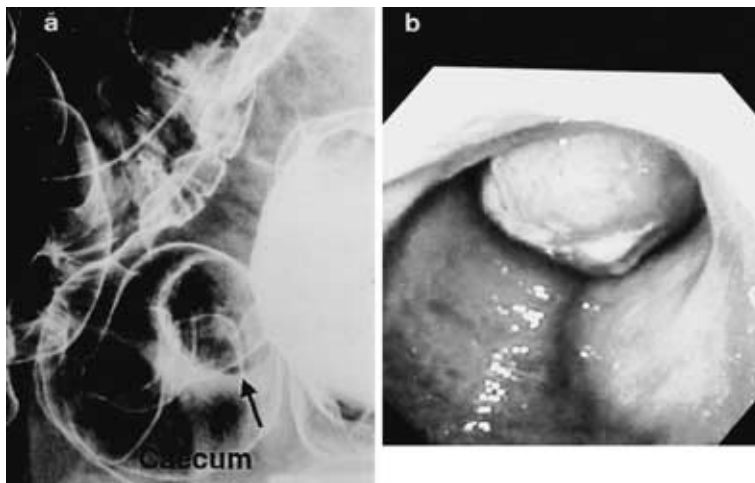


Fig. 3 a : Macroscopic findings of the resected specimen showed that the tumor originated in the appendix. It is filled with mucus. The tumor's wall is partially thick and has a papillary protrusion ()
 b and c : Microscopic findings shows mucinous cystadenoma of the appendix.(H. E. x 100)

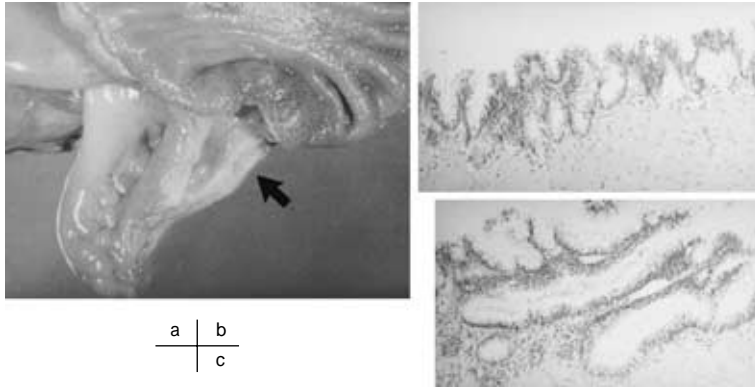


Table 1 42 reported cases of Mucinous tumor of appendix with intussusception in Japan

Sex : male 16, female 26		Replacement of intussusception :	
Age : 21 ~ 89 years old		intraoperative	21
Chief complain : abdominal pain	35	spontaneous	3
abdominal mass	4	barium enema	8
abdominal fullness	1	not released	6
melena	2	unknown	4
Preoperative diagnosis :		Pathological diagnosis :	
intussusception	27	mucinous cystadenoma	7
obstructive ileus	2	mucocele	21
cecal submucosal tumor	4	myxoma	3
ileocecal tumor	3	myxoglobulosis	4
abdominal abscess	1	hyperplasia	3
appendical mucocele	1	mucinous cystadenocarcinoma	1
cecal cancer	1	mucinous adenocarcinoma	1
acute appendicitis	1	unknown	2
unknown	2		
Operational method :			
ileocecal resection	25		
partial resection of cecal	9		
appendectomy	2		
right hemicolectomy	4		
unknown	2		

されたり、他の疾患で開腹された際に偶然見い出されたものも多い。今まで、虫垂粘液嚢胞腺腫の術前診断は困難とされてきたが、報告では49%が術前に虫垂腫瘍と診断されている。虫垂粘液嚢腫の画像上の特徴として、大腸X線検査で虫垂開口部に粘膜下腫瘍様所見、内視鏡検査で特異的な volcano sign(粘膜下腫瘍様

隆起とその中心に虫垂開口部を認める)が、また腹部CTで右下腹部に石灰化や壁の造影化を伴う嚢胞腫瘍として捉えられている⁷⁾⁻⁹⁾。良・悪性の鑑別は組織診断によらざるをえず、血中CEA値上昇例の報告¹⁰⁾⁻¹²⁾もあるが、癌の存在とは必ずしも一致していない。また、組織学的に悪性でなくても臨床上再発することも

あり、腹膜偽粘液腫となると予後不良である¹³⁾¹⁴⁾。治療は診断即手術である。肉眼的に癌との鑑別が困難で回盲部切除がなされる傾向にある。

一方、虫垂粘液嚢腫が原因となった腸重積は、本邦では山田ら¹⁵⁾が34例報告しその後も含め我々の検索では自験例を含め42例の報告があった (Table 1)。その内、自験例のような粘液嚢胞腺腫によるものは7例のみである^{15)~18)}。発症は腹痛・腫瘤触知が多く腸重積症状としての下血は7%と少なく、術前に診断されたものは25例であった。自験例で通院中腸閉塞症状や所見が一時改善していたことから、自然寛解と考えられる症例もあるが全例手術されている。術式は成人腸重積は器質的疾患に伴うため整復せず腸切除とされたり、腫瘤が虫垂根部にない症例では腸重積を解除し虫垂切除のみがなされた報告もある。虫垂腫瘍の術前診断でも癌との鑑別が術中には困難であり¹⁹⁾先に述べたように回盲部切除がなされる傾向にある。自験例は開腹時の所見から虫垂根部に硬い腫瘤を触知するとともに虫垂腸重積症の分類のIII型(虫垂根部が盲腸内へ嵌入する)に該当し²⁰⁾、また癌との鑑別も困難であったためにリンパ節郭清を伴う回盲部切除術を行った。

本稿を終えるにあたり、御指導を賜りました名古屋大学第1外科教室教授、二村雄次先生に深謝いたします。

文 献

- 1) 綿貫 詰：虫垂。編者：現代外科学体系，第36巻 (B)。中山書店，東京，1974, p221-293
- 2) 長谷和生，望月英隆：虫垂粘液嚢胞腺腫。別冊日本臨床消化管症候群 (下巻)。日本臨床社，大阪，1994, p738-741
- 3) Higa E, Rosai J, Pizzimbono CA et al : Mucosal hyperplasia, mucinous cystadenoma, and mucinous cystadenocarcinoma of appendix. *Cancer* 32 : 1524-1541, 1973
- 4) 岩下明德，山田 豊，八尾建史ほか：外科切除虫垂2,169例の臨床病理学的検索。胃と腸 25 : 1185-1194, 1990
- 5) 長谷川誠，永鷺嘉嗣，和田信昭ほか：虫垂粘液嚢胞腺腫の1例。日臨外会誌 60 : 1854-1861, 1999
- 6) 石田秀之，龍田眞行，川崎高俊ほか：虫垂粘液嚢腫の1例。日臨外会誌 60 : 149-153, 1999
- 7) 佐藤剛利，北守 茂，奥村利勝ほか：画像所見から術前に診断しえた虫垂粘液嚢腫の1例。胃と腸 25 : 1209-1213, 1990
- 8) 石川 勉，牛尾泰輔，山田達哉ほか：虫垂悪性粘液嚢腫の1例。胃と腸 22 : 1244-1246, 1987
- 9) Skaane P : Radiological features of mucocele of the appendix. *Fortschr Roentgenstr* 149 : 624-628, 1988
- 10) Hamilton DL, Stormont JM : The volcano sign of appendiceal mucocele. *Gastrointest Endosc* 35 : 453-456, 1989
- 11) 新海政幸，市原隆夫，裏川公章ほか：血清CEAが高値を示した虫垂粘液嚢胞腺腫の1例。日本大腸肛門病学会誌 47 : 259-263, 1994
- 12) 赤坂義和，花村典子，木田英也ほか：高CEA血症を呈した虫垂粘液嚢腫の1例。日臨外医会誌 58 : 419-424, 1997
- 13) Aho AJ : Benign and malignant mucocele of the appendix. *Acta Chir Scand* 139 : 392-400, 1973
- 14) Navel R, Lewis A : Role of surgery in the treatment of pseudomyxoma peritonei. *J R Coll Surg Edinb* 35 : 21-24, 1990
- 15) 山田達治，近藤 哲，小川弘俊ほか：腸重積をきたした虫垂粘液嚢腫の1例。日臨外会誌 59 : 1036-1042, 1998
- 16) 谷村慎也，東野正幸，大杉治司ほか：虫垂粘液嚢胞腺腫の2例。日臨外医会誌 52 : 2683-2689, 1991
- 17) 岩下清志，川村一彦：腸重積を合併しイレウス症状を呈した虫垂粘液嚢胞の1例。日臨外医会誌 49 : 321-324, 1988
- 18) 岡 義雄，中野博史，衣田誠克ほか：虫垂粘液嚢胞の1例。日臨外医会誌 52 : 2416-2420, 1991
- 19) Wolff M, Ahmed N : Epithelial neoplasms of the vermiform appendix : Adenocarcinoma of the appendix. *Cancer* 37 : 2493-2510, 1976
- 20) McSwain B : Intussusception of appendix. *South Med J* 34 : 263-271, 1941

A Case of Intussusception Caused by Mucinous Cystadenoma of the Appendix

Yoshihisa Shibata and Masahide Fukaya

Department of Surgery and Proctology, Toyohashi Municipal Hospital

A 50-year-old man had intermittent abdominal pain and was admitted to our hospital for ileus. Intussusception was suspected, but the diagnosis was not established by any of the examinations. Barium enema, colonoscopy, and CT revealed the cause of his illness to be an appendiceal tumor, and laparotomy was performed. At laparotomy, the cecum was loosely adherent to the retroperitoneum. A diagnosis of mucinous tumor of the appendix that had intussuscepted into the cecum was made, and ileocecal resection was carried out. Histopathological examination revealed mucinous cystadenoma of the appendix of low grade malignancy. Mucinous cystadenoma of the appendix is a rare disease, and intussusception by mucinous cystadenoma of the appendix is even rarer. Cases reported in the Japanese literature are reviewed.

Key words : appendix, intussusception, mucinous cystadenoma

[Jpn J Gastroenterol Surg 34 : 272 - 276, 2001]

Reprint requests : Yoshihisa Shibata Department of Surgery and Proctology, Toyohashi Municipal Hospital
50 Haken-nisi, Aotake-cho, Toyohashi, 441 8570 JAPAN
