

腸閉塞症を併発した原発性早期虫垂粘液囊胞腺癌の1例

余市協会病院外科¹⁾, 北海道大学腫瘍外科²⁾

高田 知明¹⁾²⁾ 吉田 秀明¹⁾ 塚田 守雄¹⁾
奥芝 俊一²⁾ 加藤 紘之²⁾

症例は94歳の女性。開腹歴なし。主訴は腹部膨満、腸閉塞症の診断で当院へ入院した。入院時、右下腹部に圧痛を認めたが腹膜刺激症状を認めず、また腹部腫瘍は触知しなかった。CEAは19.9ng/mlと高値を示した。腹部単純X線検査で小腸閉塞像、腹部エコー検査で右下腹部に嚢胞性腫瘍像、腹部CT検査では腫大した虫垂嚢胞性腫瘍が回腸を圧迫し閉塞している像を呈していた。以上より虫垂粘液囊腫による腸閉塞症の診断で緊急手術を施行した。開腹すると虫垂腫瘍が回腸に癒着し圧迫しており回盲部切除術を施行した。病理組織学的には早期の原発性虫垂粘液囊胞腺癌と診断された。本症例は本邦における原発性早期虫垂癌の最高年齢症例であり、また虫垂粘液囊腫を合併し腸閉塞症を発症した極めてまれな症例と思われる。

はじめに

早期虫垂癌はまれな疾患で本邦では1954年の初報告¹⁾以来2001年1月²⁾まで65例が報告されているに過ぎない。本症は急性虫垂炎など他の疾患の術中の偶発病変として発見されるか、無症状で経過し検診での大腸精査中に発見されることが多い。今回、われわれは早期虫垂粘液囊胞腺癌が腸閉塞症で発症した超高齢者の1手術例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：94歳、女性

主訴：腹部膨満

既往歴：高血圧症、多発性脳梗塞で当院通院中。開腹歴の既往なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2001年3月10日腹部膨満のため当院内科を受診し、イレウスの診断で当科に紹介された。

入院時現症：体温36.4℃、血圧116/64mmHg、脈拍72/min。四肢と顔面に冷汗を認めた。腹部全体が膨隆し、右下腹部に圧痛を認めたが腹膜刺激症状は認めなかった。腹部腫瘍は触知せず、腸雑音は減弱していた。

入院時血液検査所見：白血球数 $10,100/\text{mm}^3$ (seg 89.6%)、CRP 22.77mg/dl、BUN 49.6mg/dl、Cr 1.69mg/dl、Hb 14.1g/dl、と強い炎症反応と脱水による腎不

全傾向を認めた。腫瘍マーカーはCEAが19.9ng/mlと高値を示した。

腹部単純X線検査：ほぼ全小腸のガス拡張像を認めたが大腸にはガス像は認めず、回腸遠位側での閉塞が示唆された。

腹部エコー検査：右下腹部に、内部が均一でhypoechoic、辺縁の一部がstrong echoを示す嚢胞性腫瘍像を認めた (Fig. 1)。

腹部CT検査：ほぼ全小腸の拡張を認めたが大腸ガス像は認めず小腸イレウス像を呈していた。虫垂は盲腸下端より腫大し、辺縁の一部に壁の石灰化を伴い、内部が均一でlow densityの嚢胞性腫瘍像を呈していた。この虫垂腫瘍は上行結腸に沿うように先端が頭側を向き、虫垂根部と先端部が回腸を管外性に2箇所を圧迫し、閉塞をきたしたものと推察された (Fig. 2A, B)。

以上より、虫垂粘液囊腫による腸閉塞症と診断し、2001年3月11日緊急手術を施行した。

手術所見：右傍腹直筋切開で開腹すると漿液性の腹水を少量認めた。虫垂は超鶏卵大に腫瘍化し、先端が頭側を向き、根部と先端の2箇所で回腸終末部に癒着し機械的に圧迫していた (Fig. 3)。癒着は容易に剝離され、イレウスを解除した。他の腸管には異常は認めなかったため回盲部切除術を施行し手術を終えた。

摘出標本肉眼所見：虫垂は $10.0 \times 5.0 \times 5.0\text{cm}$ と腫大し、重さは110gであった。内部は淡黄色ゼリー状内容物でみだされていた。虫垂開口部は閉塞し、いわゆる

Fig. 1 Ultrasonography revealed a cystic mass containing profuse internal echogenicity with calcification in the wall (arrows)



虫垂粘液嚢腫を呈していた (Fig. 4A, B).

病理組織学的所見：虫垂の上皮は粘液産生性の高い高円柱状上皮で異型は強くないものの、ところどころ乳頭状の突出、核腫大、重層化、核の極性の消失を伴っており悪性像を呈していた。癌細胞自体の間質浸潤は認めず、深達度 m であった (Fig. 5)。

以上より原発性早期虫垂粘液嚢胞腺癌と診断した。

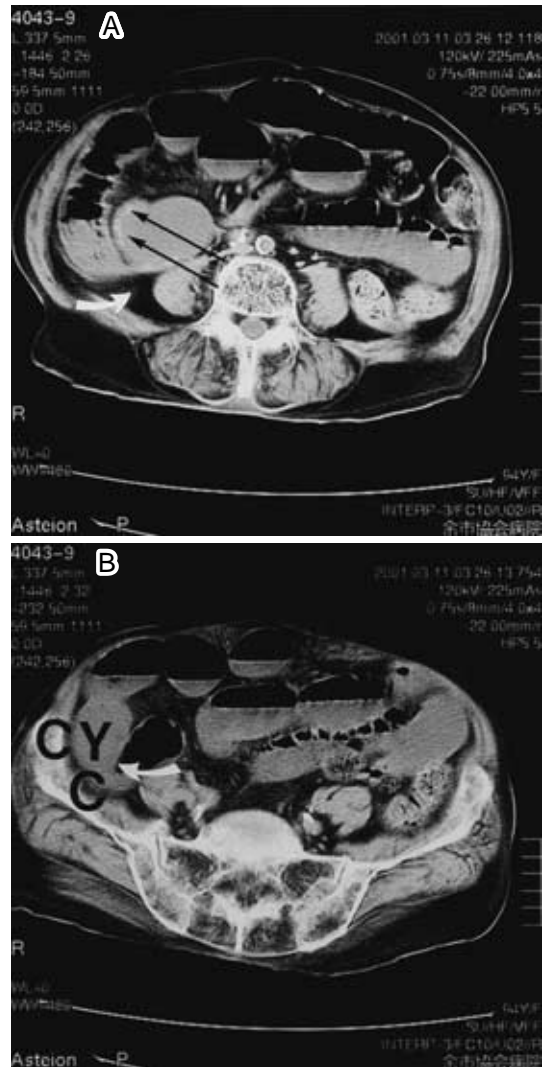
術後経過：合併症なく術後 25 日目から経口摂取開始し、リハビリのうえ術後 57 日目に退院した。CEA は 5.8ng/ml と正常化した。

考 察

虫垂粘液嚢腫とは「appendiceal mucoceles are a group of lesions in which the appendiceal lumen becomes distended with mucus」という定義がよく引用されている。病理組織学的に 1) mucosal hyperplasia 2) mucinous cystadenoma 3) mucinous cystadenocarcinoma に分類され、その頻度はおよそそれぞれ 2 : 5 : 1 である³⁾。

診断は超音波検査、腹部 CT 検査による。超音波検査所見は、壁は層状で石灰化を伴い、内部は多様な像を呈する嚢胞性腫瘤像である。CT 所見は、多様な厚みの壁を有し、しばしば、曲線状の石灰化を伴う。造影 CT 検査で壁は強く増強されるが、限局性の結節部分を有

Fig. 2 A : Abdominal CT at the appendiceal tip level revealed. A well-encapsulated cystic mass with curvilinear calcifications (arrows) in the wall which compressed the distal ileum (curved arrow) B : Abdominal CT at the cecal tip level revealed. An ovoid cystic mass (CY) on the the cecum (C) compressed the terminal ileum (curved arrow)



する場合は malignant mucocele が示唆される。鑑別疾患として hydrosalpinx, ovarian cyst, lymphocele, mesenteric cyst, enteric duplication cyst, hematoma, abscess などがあげられるが、内層上皮成分に一致する高輝度エコーの輪郭と壁の石灰化により鑑別される⁴⁾。

Fig. 3 Schema of laparotomy revealed appendiceal mucocele (M) from the cecum (C) compressing (curved arrows) the terminal ileum (TI)

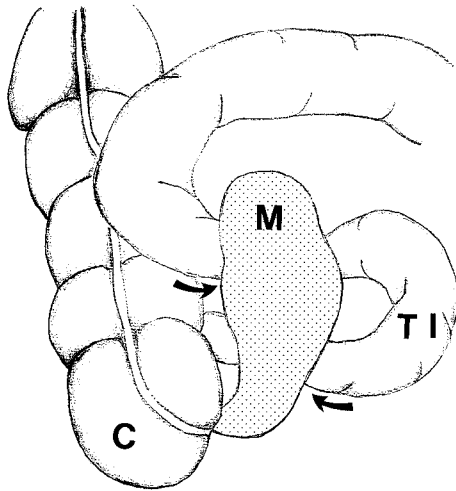


Fig. 4 Photograph of the resected specimen

A : revealed appendiceal mucocele (M) relative to the cecum (C) and terminal ileum (TI)

B : revealed the mass was filled with gelatinous mucoid materials

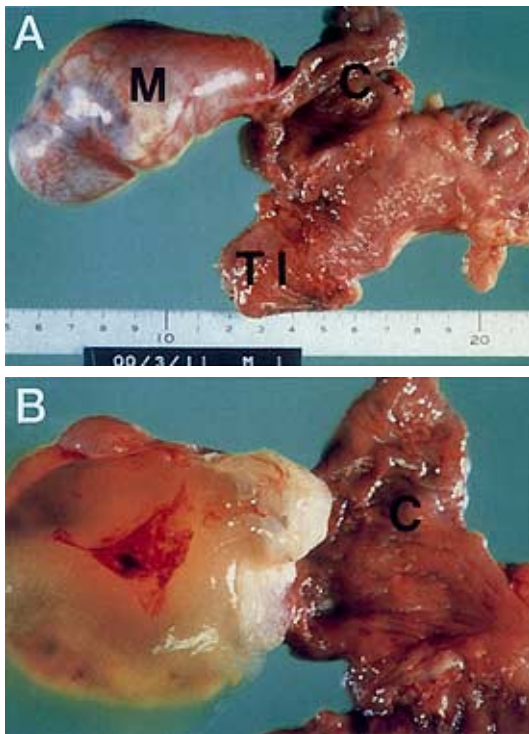
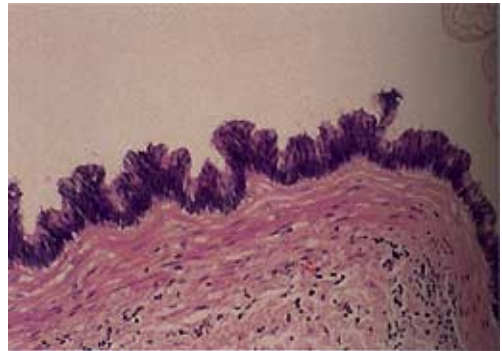


Fig. 5 Microscopic examination revealed the involvement of mucinous cystadenocarcinoma in the mucosal layer (HE staining $\times 40$)



治療は、未破裂で合併症のない虫垂粘液嚢腫は虫垂切除術で良いとされるが、破裂あるいは悪性所見が疑われる場合は右半結腸切除術が必要となる⁵⁾。腹腔鏡下切除に関しては、嚢腫を損傷なく切除する特別な注意が要求され、腹膜播種を避ける意味で開腹術に変更した方が安全と考えられている⁶⁾。

良性の粘液嚢腫は5年生存率は91~100%と予後良好である。しかし、虫垂粘液嚢胞腺癌による粘液嚢腫は腹膜偽粘液腫の合併のため5年生存率は25%と予後不良である⁵⁾。

ところで本例のように腸閉塞症を合併した虫垂粘液嚢腫の本邦報告例は、1936年から2000年3月までに、医学中央雑誌および関連文献より集計(抄録を含む)すると、自験例を含めて25例であった(Table 1)。粘液嚢腫自体が腸管を囲んでいる場合(Type I)、囲んでいない場合(Type II)の2つの形態に分類⁷⁾されている。Type Iのなかでは粘液嚢腫自体が回盲部を取り囲み一周し腸管を絞扼する場合と、粘液嚢腫がring状となり腸管が嵌入する場合がある。一方、Type IIでは、腸管が粘液嚢腫の周りに纏絡する場合と粘液嚢腫自体の、腸管、腸間膜、後腹膜などへの癒着が原因となる場合がある。この分類によると自験例はType IIに属し、粘液嚢腫の先端が回腸の一部に癒着し腸蠕動により、先端が上行結腸に沿うように頭側に移動し、回腸末端を機械的に圧迫し腸閉塞が発症したものと推察される。

一方、早期虫垂癌の本邦報告例は1959年から2001年1月までに、医学中央雑誌および関連文献より集計(抄録を含む)すると、自験例を含めて66例であった

Table 1 A review of 25 patients with intestinal obstruction caused by appendiceal mucocele in Japanese literature(1936 - 2000 . 3)

1) Sex :	male	8	5) Operative method :		
	female	17	appendectomy + release of adhesions		8
2) Age : average 65.2(range 39 - 94)			appendectomy + intestinal resection		6
3) Types :	I	11	ileocecal resection		6
	II	13	right hemicolectomy		1
	unknown	1	others		2
4) Preoperative diagnosis :			unknown		2
ileus		16	6) Pathological category :		
(strangulated ileus 6)			mucosal hyperplasia		6
appendiceal mucocele		3	mucinous cystadenoma		6
appendicitis		1	mucinous cystadenocarcinoma		2
cystic tumor		1	unknown		11
acute abdomen		1			
unknown		3			

Table 2 A review of 66 patients with primary early appendiceal cancer in Japanese literature (1959 - 2001 . 1)

1) Sex :	male	34	6) Preoperative diagnosis :		
	female	32	appendicitis		18
2) Age : average 62.6(range 26 - 94)			appendiceal cancer		14
3) Classification :			appendiceal mucocele		6
colonic type	46(m : 28 sm : 18)		appendiceal intussusception		5
cystic type	18(m : 10 sm : 8)		cecal cancer		3
mixed type	2(m : 1 sm : 1)		others		20
4) Clinical symptoms :			7) Treatment		
abdominal pain		37	ileocecal resection		32
(in right lower quadrant 25)			(m : 15 sm : 17)		
asymptomatic		16	right hemicolectomy		17
abdominal distension		2	(m : 11 sm : 6)		
others		11	appendectomy		10
5) Complications :			(m : 7 sm : 3)		
carcinoma in(with)adenoma		22	cecotomy		4
appendiceal mucocele		16	(m : 4 sm : 0)		
appendicitis		7	others		1
double cancer		7	unknown		2
appendiceal intussusception		6			
appendiceal diverticulum		1			
intestinal obstruction		1			

(Table 2) .

自験例を除くと 92 歳が最高例であった 臨床の特徴として急性虫垂炎など他の疾患として開腹され偶発病変として発見される症例が 30 例(45.5%) , 無症状で大腸精査中(検診での便潜血陽性など) に発見される症例が 16 例(24.2%) であり , 合わせると 70% を占める . 身体所見では腹部腫瘤触知は 34.5% , 血液生化学検査

で CEA の上昇を認めたのは 19.2% であり , 特徴的な所見に乏しい . 術前診断では急性虫垂炎とされたものが 18 例(27.3%) と最も多いが , 虫垂癌と組織診断に至っている例も結腸型 13 例 , 囊腫型 1 例の計 14 例(21.2%) が報告されている .

われわれの症例と同じく虫垂粘液囊腫を併存したものは 16 例(24.2%) であるが , さらに腸閉塞症を呈し

たのは自験例が初めての症例であった。術式では回盲部切除術(腹腔鏡補助下4例)が32例(48.9%),結腸右半切除術が17例(25.8%)に施行されていた。リンパ節転移を認めたのは1例(sm低分化腺癌),再発例は回盲部切除術および所属リンパ節郭清が施行された1例(sm粘液嚢胞腺癌の再発による腹膜偽粘液腫で死亡)であった。

虫垂癌の治療としては,5年生存率は虫垂切除術20~46%,結腸右半切除術61~63%であり,m癌では虫垂切除,sm癌や進行癌ではリンパ節郭清を伴う結腸右半切除術が推奨されている^{8,9)}。しかし,早期虫垂癌の症例は少なく,術式と予後の相関性について,今後の検討が必要であると思われる。

文 献

- 1) 日野和雄,田村竜男:原発性虫垂癌の2例.癌の臨 5:701-707,1959
- 2) 野本一博,島多勝夫,増山喜一ほか:術前診断しえた原発性早期虫垂腺癌の1例.日臨外会誌 62:167-171,2001
- 3) Higa E, Rosai J, Pizzimbono CA et al: Mucosal hyperplasia, mucinous cystadenoma, and mucinous cystadenocarcinoma of the appendix. A re-evaluation of appendiceal mucocele. Cancer 32:1525-1541,1973
- 4) Kim SH, Lim HK, Lee WJ et al: Mucocele of the appendix: ultrasonographic and CT findings. Abdom Imaging 23:292-296,1998
- 5) Soweid AM, Clarkston WK, Andrus CH et al: Diagnosis and management of appendiceal mucocele. Dig Dis 16:183-186,1998
- 6) Moreno SG, Shmookler BM, Sugarbaker PH: Appendiceal mucocele. Contraindication to laparoscopic appendectomy. Surg Endosc 12:1177-1179,1998
- 7) 島田長人,龍礼之助,小澤哲郎ほか:虫垂粘液嚢腫に起因した索状物圧迫性イレウスの1例.外科診療 32:105-109,1990
- 8) Hesketh KT: The management of primary adenocarcinoma of the vermiform appendix. Gut 4:158-168,1963
- 9) Andersson A, Bergdahl L, Boquist L: Primary carcinoma of the appendix. Ann Surg 183:53-57,1976

A Case of Appendiceal Primary Mucinous Cystadenocarcinoma In Situ Presenting as a Small Bowel Obstruction

Tomoaki Takada^{1,2)}, Hideaki Yoshida¹⁾, Morio Tsukada¹⁾, Shunich Okushiba²⁾ and Hiroyuki Katoh²⁾

¹⁾Department of Surgery, Yoichi Kyokai Hospital

²⁾Surgical Oncology, Division of Cancer Medicine, Hokkaido University Graduate School of Medicine

A 94-year-old woman with a distended abdomen and no history of previous surgery was found on physical examination to have a distended, tympanic abdomen with tenderness in the right lower abdominal quadrant but without rebound tenderness or muscular guarding. No palpable masses were found. Elevated serum CEA (19.9 ng/ml, normal range: <6.0 ng/ml) was found. Abdominal x-ray showed dilated loops of almost all of the small bowel suggestive of terminal ileum obstruction. Ultrasonography (US) showed a cystic mass with variable internal echogenicity and calcification wall in the right lower quadrant. Computed tomography (CT) showed a well-encapsulated cystic mass with curvilinear calcification wall in the pericecal area compressing the terminal ileum. Small bowel obstruction due to appendiceal mucocele was diagnosed preoperatively. At emergency laparotomy, we found a mass full of mucoid material extending from the appendix, which compressed the terminal ileum, and conducted ileocecal resection. Pathologically we diagnosed appendiceal mucocele caused by mucinous cystadenocarcinoma in situ. The patient had a smooth postoperative course. US and CT were useful in diagnosing mucocele of the appendix and differentiating this from mimicking diseases. We review 66 patients with primary early carcinoma, which means the involvement of carcinoma in the mucosal or submucosal layers, of the appendix in the Japanese literature. Our case is the oldest in primary early carcinoma of the appendix, and is the first accompanied by small bowel obstruction.

Key words: early carcinoma of the appendix, appendiceal mucocele, intestinal obstruction

[Jpn J Gastroenterol Surg 35: 542-546, 2002]

Reprint requests: Tomoaki Takada, Department of Surgery, Yoichi Kyokai Hospital
85 Kurokawa-cho, Yoichi-cho, Yoichi-gun Hokkaido, 046-0003 JAPAN