

症例報告

骨髄異形成症候群に合併した Amyand's hernia の1例

弘前市立病院外科, 同 臨床検査科*

境 雄大 佐藤 浩一 小笠原紘志
須藤 泰裕 小柳 雅是 田中 正則*

症例は骨髄異形成症候群と診断されている67歳の男性で、右鼠径部の腫脹と疼痛を主訴に近医を受診した。右鼠径ヘルニア嵌頓と診断され、当科に入院した。右鼠径部に3.5cmの有痛性の腫瘤を認め、還納は困難であった。血液検査で汎血球減少症を認めた。全身麻酔下に手術を施行した。ヘルニア内容は虫垂であり先端部は絞扼され、暗赤色を呈していた。虫垂切除術を行った後、メッシュプラグ法を行った。摘出虫垂の病理組織学的検査所見は先端変色部に一致してびらんと漿膜炎を認めた。術後経過は良好で、術後8日目に軽快・退院した。鼠径ヘルニア内の虫垂嵌頓は比較的まれであり、Amyand's hernia と呼ばれる。自験例は汎血球減少を有する易感染性疾患に発症した Amyand's hernia であったが、創感染を生じることなく治癒した。

はじめに

鼠径ヘルニアはしばしば経験する疾患であるが、内容が虫垂であることは比較的まれであり、Amyand's hernia と呼ばれる¹⁾。一方、骨髄異形成症候群 (myelodysplastic syndrome; 以下、MDS と略記) は汎血球減少と好中球機能低下を示す血液疾患であり、死亡原因の第1位は感染症とされている²⁾³⁾。今回、我々はMDS患者に発症した Amyand's hernia の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：67歳、男性

主訴：右鼠径部腫脹・疼痛

既往歴：2006年5月に両下肢の痙攣を主訴に近医内科を受診した際に血液検査で汎血球減少症と診断された。ビタミンB₁₂、葉酸は正常であったため、同年6月に骨髄穿刺を行い、46XY, inv(9)と染色体異常を認め、MDSと診断され経過を観察していた。

現病歴：2006年9月上旬午後に右鼠径部違和感に気づいた。同日夜間に右鼠径部の疼痛が出現した。翌朝、近医を受診し、右鼠径ヘルニア嵌頓

と診断され、ただちに当科を紹介され、入院となった。

入院時現症：体温37.4℃、血圧133/76mmHg、脈拍76拍/分・整。心雑音なし、呼吸音ではラ音を聴取しなかった。腹部は平坦で、圧痛・腹膜刺激症状は認められなかった。右鼠径部に径3.5cmの有痛性の腫脹を認めたが、還納は困難であった。

入院時検査所見：白血球数2,830/μl (好中球71.7%)、赤血球数296×10⁴/μl、血小板6.7×10⁴/μlと汎血球減少を認めた。CRPは1.5mg/dlと軽度上昇していた。CPKは211IU/lと正常域であったが、LDHが235IU/lと軽度上昇していた。その他、肝機能、腎機能、電解質、凝固機能に異常を認めなかった。

腹部単純X線検査所見：鏡面像など腸閉塞を示唆する所見はなかった。

腹部単純CT所見：右鼠径ヘルニアが認められ、内容は脂肪濃度が主体であったが、盲腸と連続性を有する最大径12mmの管状構造物を認めたが、内部にガス像や結石を疑う所見はなかった (Fig. 1)。腹部から骨盤にかけて腸管の拡張はなかった。

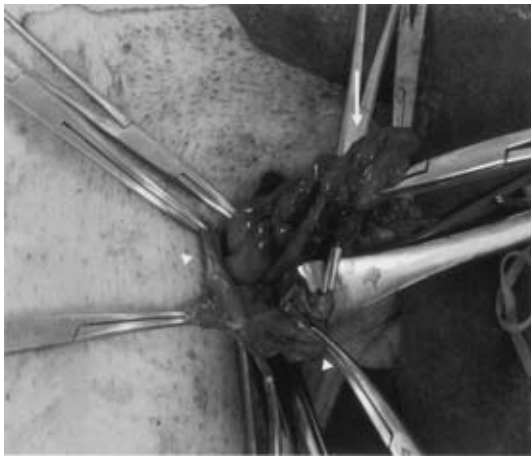
以上の所見から、後方視的に見れば虫垂の右鼠径ヘルニア内嵌頓が強く疑われるが、この時点で

<2006年11月22日受理>別刷請求先：境 雄大
〒036-8004 弘前市大町3-8-1 弘前市立病院外科

Fig. 1 Plain computed tomography showed right inguinal hernia. The contents of hernia were consisted of fat density and tubular structure arising from cecum (arrow).



Fig. 2 Intraoperative findings revealed the diagnosis of right external inguinal hernia, and an vermiform appendix (arrow) was lying in the inguinal hernia sac (arrow head).



は臓器の同定はできないまま右鼠径ヘルニア嵌頓として緊急手術を行った。

手術所見：全身麻酔下に腫瘍直上に4.5cmの皮膚を切開した。ヘルニア嚢を切開すると少量の暗赤色の腹水が認められた。ヘルニア嚢の内容は虫垂であり、先端部が約3cmにわたり暗赤色を呈し絞扼による変化を認めた (Fig. 2)。穿孔は認められなかった。ヘルニア門を開大することなく、虫垂切除術が可能であった。ヘルニア嚢周囲の汚染が軽度であったため、創部を温生食で洗浄した後、メッシュプラグ、オンレイパッチを用いた ten-

Fig. 3 Macroscopic findings of the resected vermiform appendix. The vermiform appendix was 7.8 centimeters, and the apex was colored dark red. Neither fecalith nor perforation was seen.



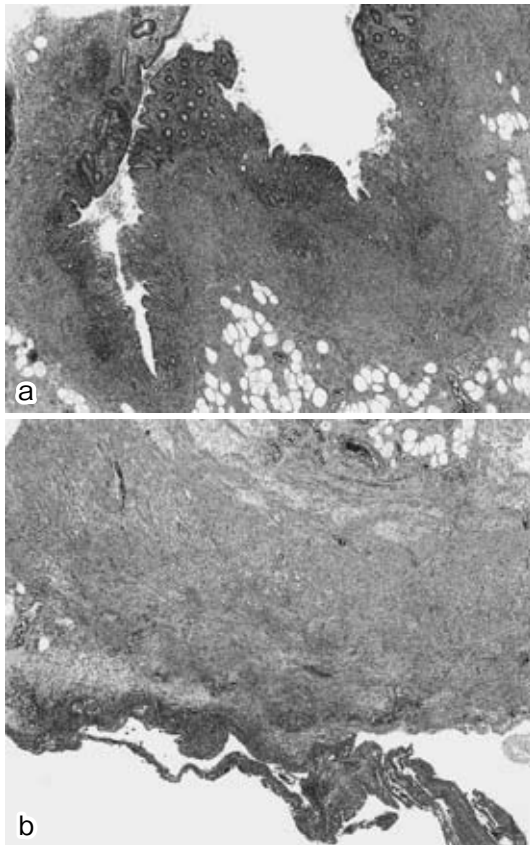
sion free 法で修復した。

摘出標本肉眼検査所見：7.8cmの虫垂で先端約3cmが暗赤色であったが、根部の炎症は軽度であった (Fig. 3)。糞石、穿孔はなかった。

病理組織学的検査所見：虫垂先端の粘膜側はびらん、好中球浸潤、出血を認めた (Fig. 4a)。高度の漿膜炎を認め、筋層にも炎症細胞浸潤を認めた (Fig. 4b)。漿膜側と粘膜側の炎症性変化に連続性はなく、通常の蜂窩織炎性・壊疽性虫垂炎の所見とは異なっていた。ヘルニア嚢には高度の好中球浸潤を認めた。

術後経過：第2世代セフェム系抗菌薬を投与していたが、術後2日目に38℃以上の発熱があり、易感染性の疾患を有することを考慮し、抗菌薬を第3世代にセフェム系に変更した。以後の経過は良好であった。白血球数は経過を通じて2,000/μl前後で推移したが、CRP値は術後3日目に15.5 mg/dlと最高値を示し、以後は漸減し、術後8日目には1.3mg/dlとなった。術後8日目に感染徴候もなく軽快・退院した。

Fig. 4 Microscopic examination of the vermiform appendix showed erosion, neutrophil infiltration and hemorrhage in mucosa (a, H-E×4), and severe serositis with neutrophil infiltration into the muscular layer (b, H-E×4). There was not continuity between mucosal inflammatory findings and those of serositis. The findings were different from those of typical phlegmonous or gangrenous appendicitis.



考 察

MDSは前白血病性格をもつ予後不良な原因不明の血液疾患であり、汎血球減少と血球のさまざまな形態異常を呈する⁴⁾。MDSは好中球機能低下が基盤にあるため、白血病化の有無にかかわらず感染症が死因の第1位を占める²⁾³⁾。

鼠径ヘルニア嵌頓は全鼠径ヘルニアの5%以下で⁵⁾、内容物は小腸、S状結腸、卵巣、大網の順に頻度が高い。虫垂が嵌頓した鼠径ヘルニアは比較的まれであり、Amyand's herniaと呼ばれる。鼠径ヘルニア内虫垂嵌頓の本邦報告例は1983年から

2006年8月までの期間で「鼠径ヘルニア」、「虫垂」、「嵌頓」および「Amyand」をキーワードとして医学中央雑誌を用いて検索したかぎりでは、学会抄録を除いて14例であった (Table 1)^{6)~19)}。

年齢は生後1か月から84歳(平均52.1歳)で、鼠径ヘルニアの好発年齢である1歳未満と40歳以上に多く認められた。性別は男性が多く77.3%であった。臨床症状は右鼠径部腫脹・疼痛が86.7%と多く、右下腹部痛が13.3%であった。既往歴・基礎疾患は同側鼠径ヘルニア手術が1例に認められたが、MDSに発症したのは自験例のみであった。診断は窪田⁶⁾が急性虫垂炎と診断した1例を除き、ヘルニア嵌頓と診断されていた。ヘルニア内容の診断については虫垂と診断しえた症例は3例(20.0%)と低率であった¹³⁾¹⁴⁾¹⁹⁾。ヘルニア内容を正確に診断しえた3例で術前に行った画像診断は3例全例にCT、2例で超音波検査が行われていた。自験例では後方視的にCTを評価するとヘルニア内容物の主体は脂肪濃度を示していたが、その中に結腸と連続性のある管状構造物があり、術前診断可能であった。術前診断しえた3例のうち単純CTのみを行った2例ではいずれも虫垂内に糞石があり、造影CTを行った1例では内部にガス像を伴う腸管様の管腔構造物として描出されていた。近年は急性虫垂炎の診断において超音波検査およびCTの高い診断率が報告されており²⁰⁾、いずれの検査においても内容が虫垂である可能性を考慮していれば診断可能な症例も少なくないと考えられる。また、CTを行う際には造影を行うことにより診断率の向上が期待される。

検査所見では白血球数が10,000/ μ l以上に上昇した症例が73.3%と高頻度であったが、自験例では摘出した虫垂に炎症所見を認めたが、汎血球減少を呈するMDS患者であったため白血球は低値であった。また、自験例では臨床経過を通じて白血球数の変動は認められず、白血球数による炎症の評価は困難であった。自験例では術後経過においてCRP値が有用であり、MDSなどの造血器疾患においては術後感染などの評価を行ううえで熱型、局所所見に加えてCRPが有用と考えられた。

ヘルニア嵌頓の場合の虫垂炎の発生部位はヘル

Table 1 Reported Cases of Amyand's Hernia in Japan

No.	Author	Year	Age/ Gender	WBC (/μl)	Preoperative diagnosis	Pathological findings	Surgery	Prognosis/ Wound infection
1	Kubota ⁶⁾	1985	3/M	19,000	Appendicitis	mucosal necrosis	Appendectomy Herniorrhaphy	Discharged on POD10 —
2	Nishina ⁷⁾	1989	65/F	15,500	Incarcerated hernia	mucosa : normal serositis	Appendectomy Herniorrhaphy	Discharged on POD18 —
3	Komuro ⁸⁾	1990	1M/M	11,600	Incarcerated hernia	edema, neutrophil infiltra- tion in whole layer	Appendectomy Hernioplasty	Disharged —
4	Imai ⁹⁾	1993	42/F	10,300	Incarcerated hernia	infarction (hemorrhage and infiltration of inflam- matory cells)	Appendectomy Bassini	Discharged on POD6 —
5	Uchida ¹⁰⁾	1998	36/M	16,500	Incarcerated hernia	infarction (hemorrhage and necrosis)	Appendectomy Iliopubic tract repair	Discharged on POD9 —
6	Hirano ¹¹⁾	1998	11M/M	?	Incarcerated hernia	?	Appendectomy ?	Discharged on POD4 —
7	Koide ¹²⁾	1999	71/F	11,600	Incarcerated hernia	serositis	Appendectomy Hernioplasty	Discharged after 5 months +
8	Masuyama ¹³⁾	1999	80/F	10,300	Incarcerated hernia appendix (+)	?	Appendectomy Iliopubic tract repair	Discharged on POD45 +
9	Kihana ¹⁴⁾	1999	69/M	13,500	Incarcerated hernia appendix (+)		Appendectomy Iliopubic tract repair	? —
10	Sakakibara ¹⁵⁾	2001	72/M	27,500	Incarcerated hernia	serositis	Ileocecal resection Mesh	Discharged on POD37 —
11	Kawai ¹⁶⁾	2001	43/M	7,200	Inguinal hernia		Appendectomy Mesh-plug	Discharged on POD8 —
12	Kishibuchi ¹⁷⁾	2002	82/M	5,230	Inguinal hernia	mucosa : mild inflamma- tory change inflammation of mesoap- pendix	Appendectomy Prolene Hernia System	Discharged on POD12 —
13	Hayama ¹⁸⁾	2002	77/M	11,900	Incarcerated hernia	infarction	Appendectomy Iliopubic tract repair	Discharged on POD10 —
14	Morohashi ¹⁹⁾	2004	73/F	16,600	Incarcerated hernia appendix (+)	gangrenous appendicitis	Appendectomy High ligation	Discharged on POD14 —
15	Our case		67/M	2,830	Incarcerated hernia	mucosa : erosion severe serositis	Appendectomy Mesh-plug	Discharged on POD8 —

ニア門の締め付けで虫垂内腔が閉塞することから通常の粘膜側から生じる急性虫垂炎を発生する場合と、嵌頓した虫垂が急激に締め付けられることにより漿膜側から梗塞性の炎症を来す場合に分けられるが、厳密な区別は難しい¹⁰⁾¹⁷⁾¹⁹⁾。自験例では粘膜側の炎症と高度の漿膜炎を認め、それらに明らかな連続性が認められなかったことから、虫垂内腔の閉塞に伴う粘膜側からの炎症と嵌頓による漿膜側からの梗塞性炎症の両方が生じたものと推測された。

治療は緊急手術が必要であり、虫垂切除術とヘルニア修復術が基本である。到達法は鼠径部のみ53.3%と約半数を占め、鼠径部と開腹26.7%、開腹

のみ20.0%であった。内田ら¹⁰⁾はヘルニア門からの処理が可能であれば同一創で処理したほうが侵襲・美容の面で良いと述べているが、仁科ら⁷⁾は鼠径部と腹腔側の両側から到達し鼠径部の膿が腹腔内に流出しないように注意すべきと述べている。到達法については虫垂の炎症の程度をふまえ、状況に応じて判断する必要がある。虫垂に対しては回盲部切除を行った1例を除き虫垂切除術が行われていた。ヘルニアに対する手術は人工物を用いないiliopubic tract repairなど従来法が選択されることが多く、66.7%を占めていた。しかし、近年、メッシュプラグ法などによるtension free法が再発率の低下において従来法よりも有効であること

が報告されており²¹⁾, Amyand's hernia においても自験例を含む4例でポリプロピレンメッシュを用いた tension free 法が行われていた^{15)~17)}. ポリプロピレンメッシュは材質・構造上感染に強いという特色があり, ヘルニア嵌頓により腸切除を要した症例に tension free 法による修復術を行い良好な結果を得た報告例も見られる²²⁾. しかし, 本来, 感染創や術野汚染がある症例では人工構造物の使用は慎重に行うべきであり, 自験例のような MDS という易感染病態においてはさらに慎重であるべきである. 榊原ら¹⁵⁾は穿孔を有する症例にやむをえず人工構造物を用いたと述べているが, 特に虫垂穿孔, 膿瘍形成などの高度炎症を来した症例に対しては2期的手術も考慮して人工物の留置を回避すべきである. 自験例では, ①発症から比較的早期に手術が可能であった, ②血性であったヘルニア嚢内の腹水も混濁汚染は認められなかった, ③虫垂の絞扼性変化も軽度で穿孔がなかった, ④創部の汚染が軽微で十分な洗浄を行った, ことから人工構造物を用いたヘルニア根治術を行った.

Thomas ら²³⁾は鼠径部ヘルニアに合併した急性虫垂炎において虫垂切除術とヘルニア根治術を同時に行った際のヘルニア創感染の頻度を42.9%と報告している. それに比べて, Amyand's hernia 本邦報告15例のうち, 創感染を来したのは2例(13.3%)であった¹²⁾¹³⁾. 自験例のように易感染性の症例では創感染の対策が不可欠である. 武元ら⁴⁾はMDSの術前・術後管理として汎血球減少による貧血・血小板減少に対する輸血の準備, 白血球減少による易感染性に対する注意が必要であると述べている. 白血球減少については顆粒球コロニー刺激因子 (granulocyte colony stimulating factor; 以下, G-CSF と略記) を投与しても効果が得られないことが多く, どの程度まで減少すれば感染予防にG-CSFを投与すべきかはっきりした見解がない⁴⁾. さらに, G-CSF投与による白血球病化の報告もあり²⁴⁾²⁵⁾, 慎重に投与すべきである. 自験例は術後も白血球は低値で推移したため, 炎症の評価として局所所見, 熱型などの臨床所見とCRP値を考慮して抗菌薬を選択した. 術後2日目に抗

菌薬を第3世代セフェム系に変更した後は良好に経過した. 自験例では当初第2世代セフェム系抗菌薬を用いて十分な効果が得られず, 第3世代セフェム系に変更後に良好な効果が得られたことから, 易感染性病態における術後抗菌薬選択においては通常的病態で選択される抗菌薬よりも抗菌力の強い薬剤を選択すべきと思われた. また, 易感染性病態においては局所所見, 熱型などの臨床所見, CRP値を考慮して効果が得られない場合には早期に適切な抗菌薬へ変更し, 感染予防に努めるべきである.

Amyand's hernia に対する人工構造物を用いた術式は易感染性病態においても虫垂の炎症や穿孔が認められなければ, 十分な術中・術後の感染予防対策を行うことにより安全に施行しうる術式と考えられた.

文 献

- 1) Hutchinson R: Amyand's hernia. J R Soc Med 86: 104—105, 1993
- 2) 辻司業穂子, 川西慶一, 外山圭助: 骨髄異形成症候群101例の臨床検討. 東医大誌 56: 152—168, 1998
- 3) 藤田 浩, 西村滋子, 富山順次ほか: 当院における蜂窩織炎を合併した骨髄異形成症候群の臨床的検討. 血腫瘍 44: 331—334, 2002
- 4) 武元浩新, 福永 睦, 龍田眞行ほか: 骨髄異形成症候群 (MDS) に合併したS状結腸癌の1例. 手術 59: 1623—1626, 2005
- 5) 三重野寛治: 嵌頓ヘルニア. 臨外 43: 1049—1055, 1988
- 6) 窪田茂比古, 仁科雅良, 井原 寛: 鼠径ヘルニア内, 虫垂嵌頓の1症例. 東女医大誌 55: 668—671, 1985
- 7) 仁科雅良, 藤井千穂, 宮里浩司ほか: 膿瘍形成をきたした鼠径ヘルニア内虫垂嵌頓の1治験例. 外科診療 31: 1229—1232, 1989
- 8) 小室広昭, 今泉了彦, 平田彰業ほか: ヘルニア嚢内で穿孔性虫垂炎を併発した右鼠径ヘルニア嵌頓の1例. 埼玉医会誌 25: 773—775, 1990
- 9) 今井直基, 田辺 博, 渡辺 進: 鼠径ヘルニア内虫垂嵌頓の1例. 外科診療 35: 599—602, 1993
- 10) 内田正昭, 金森弘明, 山口恵実ほか: 虫垂が嵌頓した鼠径ヘルニアの1例. 日臨外会誌 59: 1419—1422, 1998
- 11) 平野篤志, 森浦滋明, 永田純一ほか: 比較的稀な嵌頓内容であった鼠径ヘルニアの2例. 八千代病紀 18: 20—21, 1998
- 12) 小出紀正, 水野伸一, 浅野英一ほか: 腹壁膿瘍にて発症した鼠径ヘルニア虫垂嵌頓の1例. 日臨外

- 会誌 60 : 2494—2497, 1999
- 13) 増山 守, 中瀬有遠, 福田賢一郎ほか: 術前 CT にて診断し得た再発鼠径ヘルニア内嵌頓虫垂炎の 1 例. 日腹部救急医会誌 19 : 1013—1016, 1999
 - 14) 木花鋭一, 栗栖 茂, 八田 健ほか: 外鼠径ヘルニア内急性虫垂炎の 1 例. 日臨外会誌 60 : 2423—2425, 1999
 - 15) 榑原年宏, 森田誠市, 小山 眞ほか: 鼠径・陰囊部膿瘍をきたした鼠径ヘルニア虫垂・盲腸嵌頓の 1 例. 日臨外会誌 62 : 1068—1071, 2001
 - 16) 河合 徹, 松浦 豊, 河野 弘ほか: 鼠径ヘルニア内に虫垂を認めた 1 例. 日消外会誌 34 : 1341—1343, 2001
 - 17) 岸渕正典, 柳生俊夫, 山崎 誠ほか: 鼠径ヘルニア内虫垂嵌頓に Prolene® Hernia System を用いた 1 例. 臨外 57 : 117—120, 2002
 - 18) 早馬 聡, 島崎孝志, 大久保哲之ほか: 虫垂嵌頓鼠径ヘルニアの 1 例. 日臨外会誌 63 : 2058—2060, 2002
 - 19) 諸橋聡子, 笠島浩之, 吉崎孝明ほか: 外鼠径ヘルニア内の穿孔性虫垂炎の 1 例. 日臨外会誌 65 : 1864—1867, 2004
 - 20) 境 雄大: 急性虫垂炎の診断および重症度評価における腹部造影 CT 検査の有用性. 日腹部救急医会誌 26 : 481—487, 2006
 - 21) 坂本昌義, 堀 孝史, 久保琢自: 鼠径ヘルニアの術式の変遷と概略. 吉野肇一, 武藤徹一郎, 二川俊二編. 手術別冊・最新アッペ・ヘモ・ヘルニア・下肢バリックスの手術. 金原出版, 東京, 2000, p236—241
 - 22) 境 雄大, 八木橋信夫, 原田 治ほか: 超高齢者の大腿ヘルニア嵌頓に対して腸切除後に Prolene Hernia System を用いて修復した 1 例. 手術 59 : 561—564, 2005
 - 23) Thomas WEG, Voveles KDG, Williamson RCN : Appendicitis in external herniae. Ann R Coll Surg Engl 64 : 121—122, 1982
 - 24) Negrin RS, Haeuber DH, Nagler A et al : Maintenance treatment of patients with myelodysplastic syndrome using recombinant human granulocyte colony-stimulating factor. Blood 76 : 36—43, 1990
 - 25) 森川景子, 望月久義: 顆粒球コロニー刺激因子 (G-CSF) の投与が契機となり AML に移行した骨髓異形成症候群 (5q-syndrome) の 1 例. 日常診療と血 6 : 814—817, 1996

A Case of Amyand's Hernia Occurred in a Patient with Myelodysplastic Syndrome

Takehiro Sakai, Koichi Sato, Hiroshi Ogasawara,

Yasuhiro Sudo, Masashi Koyanagi and Masanori Tanaka*

Department of Surgery and Department of Pathology and Laboratory Medicine*, Hirosaki City Hospital

A 67-year-old Japanese man with myelodysplastic syndrome admitted for right inguinal swelling and pain and diagnosed with incarceration of a right inguinal hernia was found to have an irreducible round 3.5-cm mass with tenderness. Laboratory findings indicated pancytopenia, necessitating emergency surgery under general anesthesia. The patient was diagnosed with right external inguinal hernia. The hernia sac contained the vermiform appendix. The apex of the vermiform appendix was dark red and evidenced apparent ischemic change due to strangulation. We conducted appendectomy and hernioplasty using a mesh plug. Pathological examination showed erosion in the mucosa and severe serositis at the incarcerated portion of the apex of the vermiform appendix. The postoperative course was uneventful and the patient was discharged on postoperative day 8. Inguinal hernia containing the vermiform appendix, known as Amyand's hernia, is relatively rare. Despite the high risk of infection due to myelodysplastic syndrome, our patient was successfully treated without wound infection.

Key words : inguinal hernia, vermiform appendix, myelodysplastic syndrome

[Jpn J Gastroenterol Surg 40 : 781—786, 2007]

Reprint requests : Takehiro Sakai Department of Surgery, Hirosaki City Hospital
3-8-1 O-machi, Hirosaki, 036-8004 JAPAN

Accepted : November 22, 2006