

症例報告

術前診断が困難であった退縮性腸間膜炎の1例

越谷市立病院外科

小島 豊 松本 文夫 三上 陽史 行方 浩二
武井 雅彦 杉本 起一 藤原 大介 小山 裕介

症例は75歳の男性で、平成12年10月に膀胱癌に対し経尿道的膀胱腫瘍摘出術を施行。以後、外来で経過観察されていた。平成16年5月に腹部CTで小腸腸間膜に粗大な石灰化を指摘されたが経過観察。平成17年7月に施行した同検査で腸間膜を巻き込む境界不明瞭で石灰化を伴う腫瘤を指摘。平成18年2月に施行した同検査で腫瘤の増大と石灰化の増加を認め、当科を紹介受診。悪性疾患も否定できず平成18年5月開腹手術を施行した。手術は腫瘤を含め小腸部分切除術を施行。病理組織学的検査結果は退縮性腸間膜炎の診断であった。退縮性腸間膜炎は腸間膜脂肪織炎の1病期とされているが、比較的まれな疾患である。本症のように高度に石灰化を伴う腸間膜腫瘤を認めた場合、退縮性腸間膜炎も考慮し診断、治療すべきであると考えられた。

はじめに

退縮性腸間膜炎は腸間膜に生じる非特異的炎症疾患である腸間膜脂肪織炎の最終段階で高度の線維化を伴うものとされており¹⁾²⁾、比較的まれな疾患である。今回、我々は高度の線維化に加え高度の石灰化を伴い術前診断が困難であった退縮性腸間膜炎の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：75歳、男性

主訴：なし

既往歴：平成9年、高血圧。平成12年、膀胱癌で経尿道的膀胱腫瘍摘出術(以下、TUR-Bt)施行。平成13年、糖尿病。平成15年、右ソ径ヘルニア手術。

現病歴：平成12年10月に膀胱癌に対しTUR-Btを施行。以後、外来で経過観察されていた。平成16年5月のCTで小腸腸間膜に粗大な石灰化を指摘されたが経過観察。平成17年7月に施行した同検査で腸間膜に境界不明瞭な石灰化を伴う腫瘤と小腸の引きつれを認めた。平成18年2月に施行した同検査で腫瘤の増大と著明な形態変化、ま

た石灰化の増加を認め、悪性疾患も否定できず当科を紹介受診。精査加療目的で入院となった。

入院時現症：身長154cm、体重58kg、体温36.5度、血圧135/60mmHg、脈拍76回/分、整。腹部に異常所見は認めなかった。

入院時血液生化学検査：Hb 11.4g/dlと軽度貧血を認めた。生化学では異常所見は認めなかった。また、CEA 2.0ng/ml、CA19-9 17U/mlと腫瘍マーカーの上昇を認めず、IL-2も402U/lと基準範囲内であった。

腹部単純X線検査：左腎結石を認めるのみでほかに異常所見は認めなかった。

腹部CT：平成16年5月に小腸腸間膜の粗大な石灰化を認めリンパ節の石灰化と考えられた(Fig. 1a)。平成17年7月に小腸腸間膜に粗大な石灰化を伴う境界不明瞭な腫瘤を認め、周辺の消化管が一部引きつられていた(Fig. 1b)。平成18年2月に腫瘤状に一塊となった小腸とその中心部に石灰化を認め前回のCTに比べ石灰化が著増していた。画像診断上 metastatic peritoneal calcification が疑われた(Fig. 2a, b)。

腹部超音波検査：71×56×47mm 大の境界不明瞭な内部に石灰化を伴う Iso echoic mass を認めた(Fig. 3)。

Fig. 1 CT finding (a: in May, 2004 b: in July, 2005)
CT findings showed calcification (a) and a mass with
Calcification (b) in the mesentery of the small
Intestine.

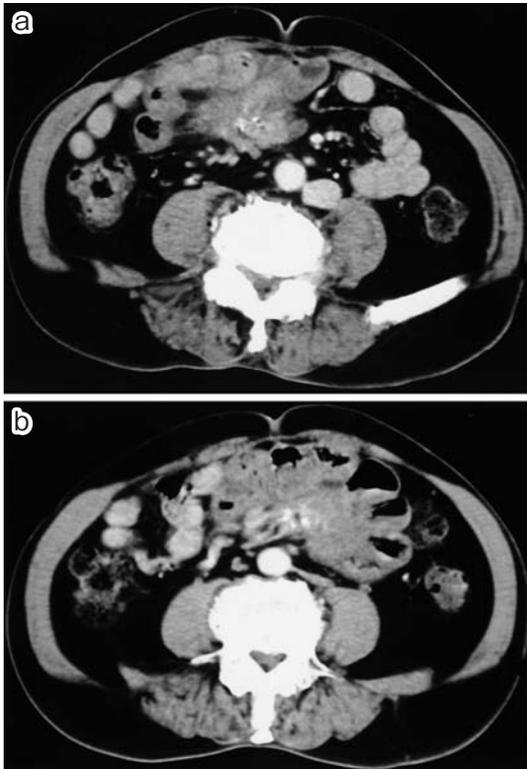
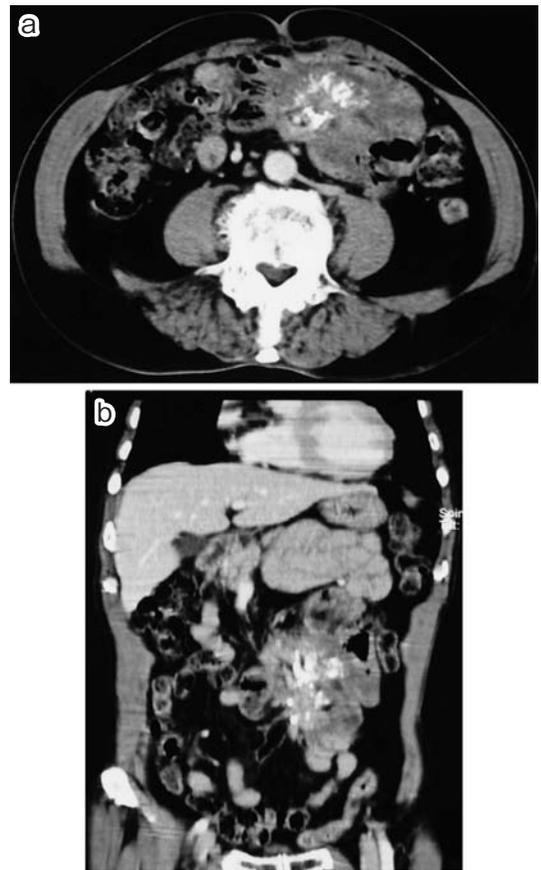


Fig. 2 CT finding in February, 2006 (a, b) b: coronal view.
The mass with calcification in the mesentery became enlarging.



小腸造影 X 線検査：明らかな異常所見は認めなかった。

ガリウムシンチグラム：明らかな異常集積は認めなかった。

以上より、転移性腸間膜腫瘍や悪性リンパ腫などの悪性疾患も否定できず腸間膜腫瘍の診断で平成 18 年 5 月開腹手術を施行した。

術中所見：腹水は認めなかった。Treitz 靱帯から約 110cm、回盲部から約 60cm の間の小腸腸間膜が硬く腫瘍状になっており小腸がアコーディオン状に引きつれていた (Fig. 4)。腫瘍を含め小腸部分切除術を施行した。

新鮮切除標本：90×55mm 大の灰白色の境界不明瞭な腫瘍で弾性硬であった (Fig. 5)。

病理組織学的検査：腸間膜の脂肪組織中に fat

necrosis, 高度の石灰沈着, 線維組織の増生, focal な小円形細胞浸潤, リンパ球を認め, 退縮性腸間膜炎の診断であった (Fig. 6)。

術後経過：術後経過良好で術後第 17 病日に退院した。

考 察

退縮性腸間膜炎は 1924 年, Julia³⁾により最初に報告され「腸系蹄の癥痕変形を来す腸間膜所見を呈するもの」と定義された非常にまれな疾患である。現在では腸間膜の原発性炎症は, 脂肪変性から線維化まで, 広いスペクトラムを有しており, 疾患の進行におけるそれぞれの病期を表していると考えられており, 主な段階は早期の段階である変性 (mesenteric lipodystrophy), 第 2 の段階の炎

Fig. 3 Abdominal ultrasonography showed high echoic lesion with acoustic shadow inside iso echoic mass.



Fig. 4 Photograph at laparotomy showed an irregular hard mass in the mesentery of small intestine (arrow).



症 (mesenteric panniculitis), そして最終段階である線維化が退縮性腸間膜炎 (retractile mesenteritis) にあたるとされている⁴⁾。通常, 第2の段階である脂肪織炎の段階で発見されることが多いため, 今までに退縮性腸間膜炎に関する本邦報告例は少なく, 医学中央雑誌で「退縮性腸間膜炎」をキーワードとして1983年から2006年までについて検索したかぎりでは4例のみであった。今回, 検索できた4例に自験例を加えた5例について文献的考察を含め検討した (Table 1)^{5)~8)}。男女比は2:3と今回の検討では女性が多かったが, 一般的には男女比2~3:1と男性優位とされている⁹⁾。年

Fig. 5 The resected specimen revealed a mass in the mesentery (arrow) and severe shortened mesentery.

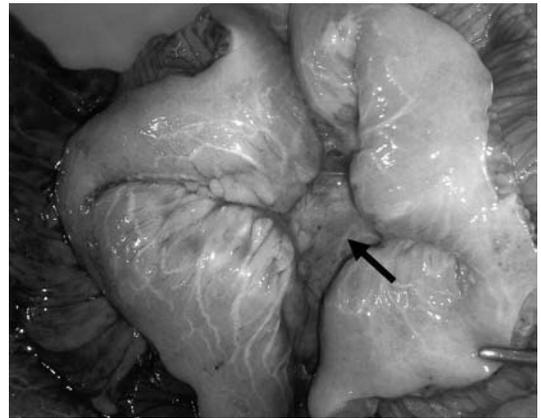
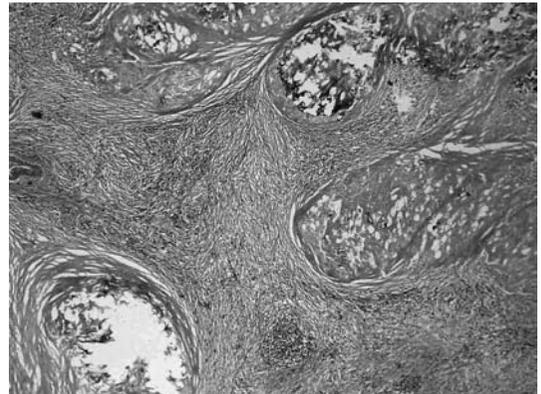


Fig. 6 H.E. stain ×40

Histological sections showed non-specific chronic inflammatory cell infiltration, fat necrosis, lymphofollicle formation and severe fibrosis.



齢は46~75歳で平均63.4歳であった。40歳以降の中高年に多いとされているが, 同様の結果であった^{10)~12)}。主訴は非特異的で腹痛, 背部痛, 腹部腫瘤, 食欲不振, 悪心, 嘔吐, 体重減少, 下痢, 腸閉塞などで無症状の症例も認めるといわれ⁶⁾, 今回の検討でも腹痛, 発熱, 腹部腫瘤, 無症状など非特異的症状で同様の結果であった。病因は基本的に非特異的損傷に対する腸間膜反応のさまざまな過程の表現であると推定され, ①消化管より吸収されるアレルゲンに対するアレルギー反応, ②

Table 1 Reported cases of retractile mesenteritis in the Japanese literature

| Author (year) | Age | Sex | Chief complain | Preoperative Diagnosis | Location of mesentery | Therapy |
|-------------------------------|-----|-----|-----------------------|------------------------|-----------------------|----------------------|
| Ikoma ⁵⁾ (1996) | 46 | F | Pain, fever, diarrhea | Malignant tumor | Sigmoid colon | Sigmoidectomy |
| Hasegawa ⁶⁾ (2001) | 74 | F | Epigastralgia | Mesenteritis | Small intestine | Conservative therapy |
| Ikegami ⁷⁾ (2004) | 58 | F | Pain, vomiting | Ileus | Small intestine | Partial resection |
| Hayashi ⁸⁾ (2006) | 64 | M | Abdominal mass | Mesenteritis | Cecum | Ileocecal resection |
| Our case | 72 | M | No complain | Metastatic tumor | Small intestine | Partial resection |

胆汁、乳び、尿、腸内容物の漏出による刺激反応、③鈍的外傷、手術外傷、静脈炎、血管炎、脂肪細胞代謝異常、温度または化学的外傷、④さまざまな感染症、⑤自己免疫疾などがいわれている¹³⁾。自験例では明らかな病因となるような既往歴は認めなかった。また、報告例でも2例で虫垂切除術、1例で高血圧、甲状腺機能低下症、胸膜炎の既往を認めたのみで明らかな病因となる既往歴は認めなかった。

確定診断は病理組織学的診断であるが、今日の画像診断の進歩により術前に診断される症例もみられる⁶⁾。診断にはCT、MRIが有用であるとされ、CTでは脂肪成分を含む軟部濃度腫瘍影を呈し、内部に石灰化を伴っている場合も多く、星形をした腸管にまで伸びる腸間膜の肥厚像や、小腸のねじれや変位が特徴的な所見といわれている¹⁴⁾。MRIでは脂肪成分によるT1強調像にてhigh intensity area、また線維性成分によるT2強調像にてlow intensity areaを認められる¹⁵⁾。その一方、CTで一部に脂肪組織が認められることがあるものの、大部分は軟部組織影を主体とする比較的均一な腫瘍として描出され¹⁶⁾、そのため悪性腫瘍特に腹膜播種、悪性リンパ腫との鑑別が困難であるとの報告もある¹⁷⁾。今回の検討でも2例が術前に画像診断上、腸間膜炎を疑っているが悪性腫瘍も否定できずそれぞれ開腹生検、回盲部切除術が施行されている。

その他の画像所見としてはガリウムシンチグラフィでは異常集積は認めないか、または認めたとしても軽度とされている⁶⁾。今回、ガリウムシン

チグラフィが施行されている3例中2例は異常集積を認めず、1例は軽度の集積を認めた。小腸、注腸造影X線検査については、腸管の圧排・偏位、狭窄、壁の伸展不良、特に片側性(腸間膜附着側)の不整鋸歯像が特徴とされる⁴⁾。本症では異常所見は認めなかったが、その他の症例では先に記したいずれかの異常を認めた。

また、Nguyen¹⁸⁾はpositron emission tomography (PET)でドーナツ状の集積像を認めたとしており、その理由を腫瘍の中心部は高度な線維化と硬化を示しており、周囲に高度な炎症を生じているためドーナツ状に描出されたと報告している。

開腹所見は腸間膜が硬く肥厚・短縮し、腸管は屈曲や狭窄を認めるようになるとされ、腸間膜の形態は42%がびまん性の肥厚、32%が単一の腫瘍形成、26%が多発の腫瘍形成といわれている⁴⁾。今回の検討では4例が単一の腫瘍形成型で1例が多発腫瘍形成型であった。

病理組織学的には腸間膜の脂肪組織を置換するように増殖する線維組織と脂肪壊死、脂肪貪食組織球浸潤、慢性炎症像(リンパ球・形質細胞浸潤)がみられ、時に局所石灰化を伴うことがあるとされている⁴⁾¹⁹⁾。

鑑別診断はdesmoid腫瘍、腸間膜転移性腫瘍、悪性リンパ腫、fibrosarcoma、腸間膜脂肪の急性炎症および脂肪壊死、脂肪腫・脂肪肉腫、びまん性大腸癌、後腹膜線維症などがあげられる⁴⁾⁶⁾。鑑別診断で重要な点は病因となる既往歴の有無、また画像上特徴的な所見の有無である。腹部CTでは石灰化を伴う軟部組織濃度の星形の腸間膜肥厚が特

徴的とされているが、特徴的な性状を示さない場合、悪性リンパ腫、腹膜播種などと鑑別が困難とされている。本症では腹部CTで特徴的所見は示していたが、腫瘤の形態の経時変化が著しくまた膀胱癌の既往歴があったため、他の悪性腫瘍による転移性腸間膜腫瘍、悪性リンパ腫の可能性も完全否定できなかった。

部位は小腸3例、大腸2例であったが、腸間膜脂肪織炎全体では本邦では大腸に多いとされている²⁰⁾。

治療は内科的には副腎皮質ステロイドや免疫抑制剤などが有効であるとされている⁹⁾。しかし、実際には試験開腹など診断的手術も含め手術が行われることが多いとされ¹²⁾¹⁹⁾、今回の検討でも診断的手術も含め全例手術が施行されている。また、自験例では経時的な変化が著しく、悪性も否定できなかったため開腹手術を施行した。

予後は一般的に良好で、通常2年以内に75%の患者で腹痛が消失し、66%で腫瘤が縮小・消失すると報告されている⁴⁾。退縮性腸間膜炎は良性疾患であり腸閉塞や腹膜刺激症状など外科的治療が必要な場合以外は術前に診断できれば内科的治療が第1と考えられる。しかし、15%の患者には悪性リンパ腫の合併がみられ、その関連として潜在する悪性リンパ腫に対する非特異的反応によって生じた退縮性腸間膜炎の可能性があると報告もあり¹⁾、内科的治療をした場合でも嚴重な経過観察が必要であると考えられた。

文 献

- 1) Kipfer RE, Moertel CG, Dahlin DC : Mesenteric lipodystrophy. *Ann Intern Med* **80** : 582—588, 1974
- 2) Weiser J, Salky B, Slepian S et al : Laparoscopic diagnosis of retractile mesenteritis. *Gastrointest Endosc* **38** : 615—617, 1992
- 3) Jula V : Sulla mesenterite retrattile esclerosante. *Policlinico (Sez Prat)* **31** : 575—581, 1924
- 4) 山崎日出雄, 林 仁守 : 腸間膜脂肪織炎. 日本臨床 (0047—1852) 別冊腹膜・後腹膜・大網・横隔膜症候. 日本臨床社, 大阪, 1996, p55—57
- 5) Ikoma A, Tanaka K, Komokata T et al : Retractable mesenteritis of the large bowel : report of a case and review of the literature. *Surg Today* **26** : 435—438, 1996
- 6) 長谷川明, 加藤勝也, 山本博道ほか : 退縮性腸間膜炎の1例. *臨画像* **17** : 108—113, 2001
- 7) Ikegami T, Sasaki T, Ezaki T et al : Retractable mesenteritis : report of a case. *Surg Today* **34** : 547—549, 2004
- 8) 林 忠毅, 中村利夫, 倉地清隆ほか : 回盲部退縮性腸間膜炎の1切除例. *日消誌* **103** : 543—550, 2006
- 9) 岡本真紀代, 大久保暢之, 山中真理子ほか : 悪性リンパ腫を合併した腸間膜脂肪織炎の1例. *日消誌* **95** : 884—889, 1998
- 10) Monahan DW, Poston WK Jr, Brown GJ et al : Mesenteric panniculitis. *South Med J* **82** : 782—784, 1989
- 11) Adachi Y, Mori M, Enjoji M et al : Mesenteric panniculitis of the colon : review of the literature and report of two cases. *Dis Colon Rectum* **30** : 962—966, 1987
- 12) 富士原知史, 池原照幸, 加藤保之ほか : 腸間膜脂肪織炎の1例および本邦報告例49例の文献的考察. *日本大腸肛門病会誌* **48** : 1054—1059, 1995
- 13) Deodhar SD, Usgaoncar RP : Sclerosing (retractile) mesenteritis. *J Postgrad Med* **26** : 269—272, 1980
- 14) Kelly JK, Hwang WS : Idiopathic retractile (sclerosing) mesenteritis and its differential diagnosis. *Am J Surg Pathol* **13** : 513—521, 1989
- 15) Kronthal AJ, Kang YS, Fishman EK et al : MR imaging in sclerosing mesenteritis. *Am J Roentgenol* **156** : 517—519, 1991
- 16) Sabate JM, Torrubia S, Maideu J et al : Sclerosing mesenteritis : imaging findings in 17 patients. *Am J Roentgenol* **172** : 625—629, 1999
- 17) 兵頭 剛, 河野良寛, 芝本健太郎ほか : CT診断が有用であった腸間膜脂肪織炎の1例. *臨放* **46** : 825—829, 2001
- 18) Nguyen BD : F-18 FDG PET demonstration of sclerosing mesenteritis. *Clin Nucl Med* **28** : 670—671, 2003
- 19) Spark RB, Yakovac WC, Wagget J et al : Retractable sclerosing mesenteritis. *Clin Pediatr (Philia)* **10** : 119—122, 1971
- 20) 岩田讓司, 武藤文隆, 栗岡英明ほか : 腸間膜脂肪織炎の2例. *日臨外会誌* **60** : 1921—1925, 1999

A Case of Preoperatively Undiagnosed Retractable Mesenteritis

Yutaka Kojima, Humio Matsumoto, Youshi Mikami, Koji Namekata,
Masahiko Takei, Kiichi Sugimoto, Daisuke Fujiwara and Yusuke Oyama
Department of Surgery, Koshigaya Municipal Hospital

A 75-year-old man undergoing transurethral resection for a bladder tumor in October 2000 and was followed up as an outpatient was found in computed tomography (CT) in May 2004 to have gross calcification in the small-intestine mesentery which was followed up. CT in July 2005 indicated a poorly demarcated tumor associated with calcification involving the mesentery. CT in February 2006 showed tumor growth and advanced calcification. Because the possibility of tumor malignancy could not be ruled out, and he underwent partial enterectomy with tumor resection in May 2006, yielding pathological diagnosis of retractile mesenteritis, considered to be a relatively late phase of mesenteric panniculitis. When a mesenteric tumor is found associated with heavy calcification, such in this case, retractile mesenteritis should be included in diagnosis and treatment.

Key words : retractile mesenteritis, mesenteric panniculitis

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 41 : 318—323, 2008]

Reprint requests : Yutaka Kojima Department of Surgery, Koshigaya Municipal Hospital
10-47-1 Higashikoshigaya, Koshigaya, 343-8577 JAPAN

Accepted : September 26, 2007