

症例報告

虫垂に発生した孤立性過誤腫性ポリープの1例

長崎大学大学院腫瘍外科, 長崎大学医学部・歯学部附属病院病理部*

野中 隆 福岡 秀敏 竹下 浩明
澤井 照光 林 徳眞吉* 日高 重和
七島 篤志 安武 亨 永安 武

患者は無症状の60歳の男性で、胃癌術後の経過観察中に受けた大腸内視鏡検査で盲腸の虫垂開口部より脱出する隆起性病変を指摘され、精査加療目的で当科紹介となった。注腸造影X線検査では粘膜下腫瘍様の隆起の中心に腫瘍性病変を認め、腹部CTでは造影効果を伴う腫瘍であった。虫垂腺腫の診断で腹腔鏡補助下回盲部切除術を施行した。病変は10×8mmの有茎性ポリープであり、組織学的には粘膜筋板の分枝が樹枝状に増生した異型のない腸粘膜を伴う腫瘍で、過誤腫と診断された。虫垂過誤腫性ポリープの症例はまれであり、色素沈着や家族歴を伴わない症例については現在まで1例が報告されているのみである。Peutz-Jeghers症候群に伴う虫垂過誤腫の本邦報告例4例と合わせて報告する。

はじめに

消化管に発生する過誤腫性ポリープの多くはPeutz-Jeghers症候群（以下、P-J症候群）に伴うものであるが、虫垂発生例の報告はまれで、本邦では現在まで4例が報告されているに過ぎない^{1)~4)}。色素沈着や家族歴を伴わない単発性の虫垂過誤腫性ポリープに至っては、PubMedで検索したかぎりではわずか1例の報告を認めるのみである⁵⁾。今回、我々は虫垂に発生した色素沈着や家族歴を伴わない孤立性過誤腫性ポリープの1例を経験したので報告する。

症 例

患者：60歳、男性

主訴：無症状

家族歴：第一度近親者に色素沈着や消化管ポリープの既往なし。

既往歴：2003年、胃体部癌に対して噴門側胃切除。

現病歴：胃癌術後、近医でfollow upされていた。2007年12月、無症状ながら受けた大腸内視鏡

で虫垂開口部より脱出する隆起性病変を指摘された。2008年1月中旬、精査加療目的で当科入院となった。

入院時現症：身長149cm、体重51kg、貧血・黄疸なく、胸・腹部の理学的所見にも異常なし。手指・口唇に明らかな色素斑もなし。

入院時検査所見：血液・生化学検査に異常なく、CEA：1.3ng/ml、CA19-9：11.8U/mlと正常範囲内であった。

注腸造影X線検査所見：虫垂開口部に大きさ20mmの立ち上がりなだらかな粘膜下隆起様の腫瘤影を認め、その中心部に顆粒状粘膜を認めた（Fig. 1）。他部位に明らかな腫瘍性病変は指摘できなかった。

大腸内視鏡検査所見：虫垂開口部は腫大しており、その中心部に内腔に突出するような隆起性病変を認めた。病変は顆粒状で、不整や発赤、びらんなどは認めなかった（Fig. 2a, b）。生検の結果は軽度の炎症細胞浸潤のみで、一部過形成性変化を認めるものの悪性所見は認められなかった。

腹部CT所見：盲腸末端に大きさ10mmの腫瘍を認めたが、所属リンパ節の腫大はみられなかった。血管再構築3D-CT画像では、回結腸動脈

<2009年1月28日受理>別刷請求先：野中 隆
〒852-8501 長崎市坂本1-7-1 長崎大学大学院腫瘍外科

Fig. 1 Barium enema examination showed an elevated tumor with a central pit in the cecum (arrow).



を栄養動脈とする造影効果の高い腫瘍であった (Fig. 3).

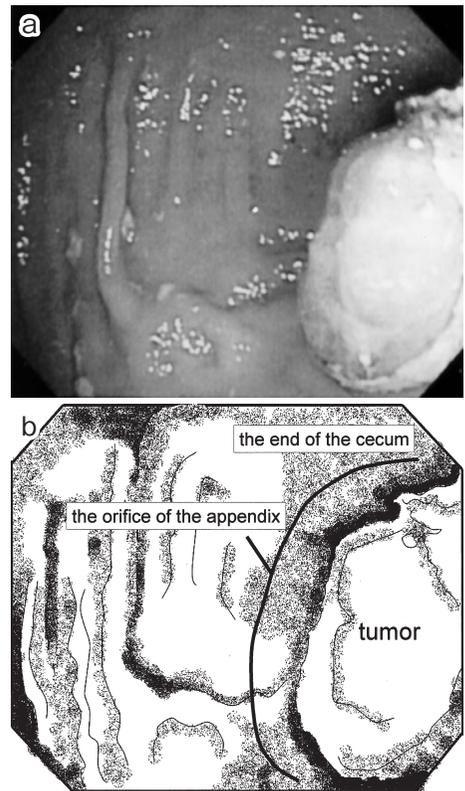
以上より、虫垂腺腫を第1に考えたが、内視鏡的摘除も困難であったため、悪性腫瘍も否定できず、2008年1月下旬、腹腔鏡補助下回盲部切除術を施行した。

手術所見：胃癌術後であったが癒着は軽度であり、腹腔鏡操作は可能であった。内側剥離を先行し、栄養血管である回結腸動脈を処理してD2郭清とした。外側授動の後、腹腔鏡下操作を終了し、4cmの小開腹創から標本を摘出した。肉眼検査所見を確認した後、層々2列で端々吻合し、手術を終了した。

切除標本：腫瘍は虫垂開口部より盲腸内腔へ脱出していた (Fig. 4a)。虫垂を注意深く開いたところ、腫瘍は大きさ10×8mmの有茎性ポリープであり、表面は粗大顆粒状・分葉状であった (Fig. 4b)。

病理組織学的検査所見：腫瘍は組織学的に太い筋線維性の茎を有していた (Fig. 5a)。上方では線維筋性結合組織が枝状の分枝を呈し、その分枝の間には非腫瘍性の腸上皮が観察された (Fig. 5b)。以上より、虫垂に発生した過誤腫と診断された。

Fig. 2 a : Colonoscopy showed the tumor prolapsing from a vermiform appendix. b : The schema is shown.



手術後経過：術後経過は良好で、現在も無症状で経過観察中である。

考 察

P-J症候群は、特有な皮膚・粘膜の色素沈着、消化管ポリポーシス、常染色体優性遺伝を3主徴とする疾患で、本邦においては約420例以上の報告がある⁶⁾。消化管過誤腫の多くはP-J症候群に伴うものであり、欧米では小腸、特に空腸に多いと報告されているが⁷⁾、本邦では胃、小腸、大腸に均等に発生している⁸⁾。

P-J症候群に伴う消化管過誤腫の組織学的特徴は、ポリープ内に向かって粘膜筋板の分枝が樹枝状に増生した腫瘍で、単純性過形成の粘膜に覆われている⁹⁾。これと同様な組織像を呈するにも関わらず、家族歴や色素沈着を伴わない消化管ポリープは、Peutz-Jeghers型ポリープ (以下、P-J型ポ

Fig. 3 Three dimensional Computed Tomography showed the tumor with a high contrasting effect feeded in ileocolic artery (arrow).

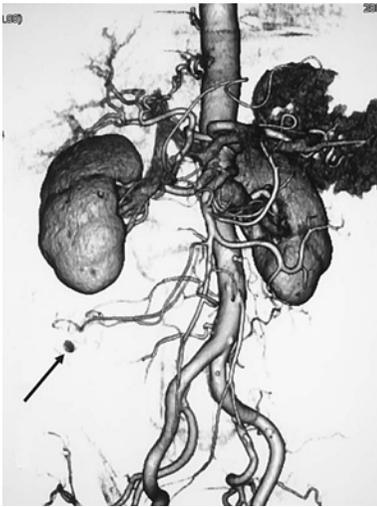


Fig. 4 Macroscopic findings of the resected specimen : (a) The tumor prolapsed from a vermiform appendix. (b) The polyp was showed a pedunculated tumor with a lobulated head.

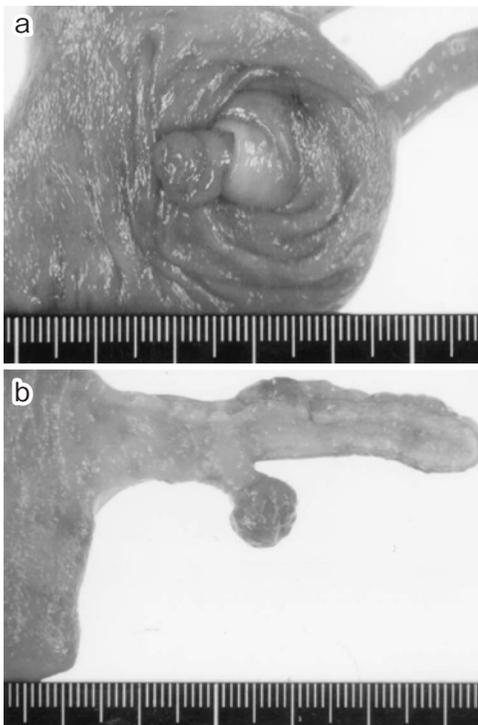


Fig. 5 Microscopic findings of tumor : (a) A loupe image (H.E. stain $\times 2.5$) (b) In the histological study, branches of the lamina muscularis mucosa growing in a dendritic form covered with hyperplastic mucosa. (H.E. stain $\times 100$)



リープ)と呼称されている¹⁰⁾. 単発性(孤立性)P-J型ポリープを検討した齋藤ら¹⁰⁾によると,平均年齢は37.8歳,性比は男:女=19:18(3例は不明)とし,ポリープ内にadenoma, carcinomaの混在が認められたものがおのおの3例(8%),2例(5%)であったと報告している. Gannonら¹¹⁾は46例の消化管過誤腫を色素沈着を有する完全型と,消化管ポリープのみを認める不完全型に分類した結果,37例が不完全型で,そのうち25例が単発性であったことを報告している. 一方,須田ら¹²⁾は,P-J型ポリープを色素沈着の有無で2群に分類した結果,診断確定時の患者年齢で,P-J症候群で2~45歳,平均19.5歳であるのに対して,P-J型ポリープ例で27~85歳,平均55.1歳で平均年齢は約35歳の差を認め,全消化管のポリープ数ではP-J型ポリープ例はP-J症候群に比べて少なく,分布している腸管部位も限定され,大部分は大腸のみに単発しており,両群間で臨床的特徴に大きな隔たりがあったと結論している.

Table 1 Hamartomatous polyp in appendix

No.	Author	Year	Age	Sex	Symptom	Pigmentation	Any other polyps	Intussusception	Treatment (method)
1	Miyahara ¹⁾	1995	40	F	anemia	(+)	(+)	(+)	cecotomy (laparotomy)
2	Yoshikawa ²⁾	1998	45	F	anemia abdominal pain	(+)	(+)	(+)	ileocecal resection (laparotomy)
3	Numata ³⁾	1999	28	F	lower abdominal pain	(+)	(+)	(-)	appendectomy (laparotomy)
4	Tanaka ⁴⁾	2000	2	F	abdominal pain	(+)	(+)	unknown	cecal resection (laparotomy)
5	Iida ⁵⁾	2008	78	M	right lower abdominal pain	(-)	(-)	(-)	appendectomy (laparotomy)
6	Our case		60	M	No symptom	(-)	(-)	(+)	ileocecal resection (Laparoscopy)

自験例は、色素沈着や家族歴を認めないため、虫垂に単発したP-J型ポリープと考えられた。医学中央雑誌で、「虫垂/過誤腫」、または「虫垂ポリープ」をキーワードとして1983年から2008年1月まで検索した結果、P-J症候群に伴う4例^{1)~4)}の報告が確認された。また、PubMedにより「appendix/hamartoma」をキーワードとして2008年6月までで検索したところ、P-J型虫垂過誤腫性ポリープの報告を1例のみ見出すことができた⁵⁾。これら5例と自験例を合わせた6例の一覧をTable 1に示す。

一般に、虫垂腫瘍に特徴的な症状はなく¹³⁾、術前診断は困難であるが、自験例では内視鏡により盲腸内に脱出した腫瘍を認めたため、虫垂ポリープとしての診断は容易であった。ただし、基部を含めた全体像の観察はできず、CTでも造影効果に富む腫瘍として指摘されたため、悪性腫瘍との鑑別は困難であった。

本疾患に対する治療として、基部を含めて盲腸側へ反転させることができれば内視鏡的切除を試みても良いと思われるが、自験例では全貌の確認が困難で悪性腫瘍も否定できなかったため、腹腔鏡補助下回盲部切除術を行った。虫垂P-J型ポリープに対する腹腔鏡下手術の報告例はないが、鏡視下手術は整容性や低侵襲、腹腔内全体を観察できることなどから、本疾患に対する治療として有用であると考えられた。なお、P-J型ポリープでは癌化¹⁴⁾や消化管以外の性腺、肺、睪臓の悪性腫瘍の合併¹⁵⁾も報告されており、悪性腫瘍全体を念頭

においた経過観察が必要であると考えられる。

文 献

- 1) Miyahara M, Saito T, Etoh K et al : Appendiceal intussusception due to appendiceal malignant polyp—An association in a patient with Peutz-Jeghers syndrome : report of case. *Surg Today* **25** : 834—835, 1995
- 2) Yoshikawa A, Kuratomi S, Mimura T et al : Peutz-Jeghers syndrome manifesting complete intussusception of the appendix and associated with a focal cancer of the duodenum and a cystadenocarcinoma of the pancreas. *Dis Colon Rectum* **41** : 517—521, 1998
- 3) 沼田典久, 長畑洋司, 長田 裕 : 虫垂にポリープ及び憩室を合併したPeutz-Jeghers症候群の1例. *日本大腸肛門病学会誌* **52** : 332—336, 1999
- 4) 田中真司, 水田祥代, 田口智章ほか : 虫垂ポリープを合併したPeutz-Jeghers症候群の小児例. *日小外会誌* **37** : 1089—1094, 2001
- 5) Iida H, Inamori M, Sekino Y et al : Acute appendicitis associated with peutz-jeghers-type hamartoma of the appendix. *Dig Dis Sci* **53** : 2832—2833, 2008
- 6) 久居弘幸, 佐々木宏嘉, 斎藤忠範ほか : 十二指腸の孤立性Peutz-Jeghers型過誤腫性ポリープの1例. *Gastroenterol Endosc* **40** : 919—924, 1998
- 7) Bartholomew LG, Moore CE, Dahlin DC et al : Intestinal polyposis with mucocutaneous pigmentation. *Surg Gynecol Obstet* **115** : 1—11, 1962
- 8) 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
- 9) 大段秀樹, 大城久司, 山本泰次ほか : 進行結腸癌とhamartomatous polypのadenoma様変化を認めたPeutz-Jeghers症候群の1例. *日消外会誌* **31** : 3037—3041, 1991
- 10) 齋藤 武, 飯野正敏, 堀江 弘 : 下行結腸に巨大な単発性Peutz-Jeghers型ポリープを認めた1小

- 見例. 日小外会誌 36 : 317—322, 2000
- 11) Gannon PG, Dahlin DC, Bartholomew LG et al : Polypoid glandular tumors of the small intestine. *Surg Gynecol Obstet* 114 : 666—672, 1962
- 12) 須田武保, 渡辺英伸, 畠山勝義ほか : 特殊な消化管ポリープ. (2) Peutz-Jeghers 症候群. *臨科学* 24 : 332—340, 1988
- 13) 白子隆志, 横尾直樹, 北角泰人ほか : 盲腸内重積を伴った虫垂腺管腺腫の1例. *日消外会誌* 33 : 745—749, 2000
- 14) 斎藤雅之, 綿引 元, 山本英明ほか : 癌化を認めた孤立性空腸過誤腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 37 : 1897—1905, 1995
- 15) Giardiello FM, Welsh SB, Hamilton SR et al : Increased risk of cancer in the Peutz-Jeghers syndrome. *N Engl J Med* 316 : 1511—1514, 1987

A Case Report of Solitary Hamartomatous Polyp of the Appendix

Takashi Nonaka, Hidetoshi Fukuoka, Hiroaki Takeshita,
Terumitsu Sawai, Tomayoshi Hayashi*, Shigekazu Hidaka,
Atsushi Nanashima, Tohru Yasutake and Takeshi Nagayasu

Division of Surgical Oncology, Nagasaki University Graduate School of Biomedical Sciences
Division of Pathology, Nagasaki University Hospital*

We report a very rare case of hamartomatous polyp of the appendix. A 60-year-old man admitted for an appendiceal tumor found in endoscopy was also found to have a tumor with a stalk in the cecum. Barium enema studied showed polypoid lesions at the cecum, with enhanced computed tomography (CT) indicating a tumor. Based on these findings, we conducted laparoscopy-assisted ileocecal resection. Histologically, the tumor was not malignant and the polypoid showed excessive hyperplasia and a prominent core consisting of branching bands of smooth muscle derived from the muscularis mucosae. The polyp was diagnosed as a hamartomatous polyp.

Key words : hamartoma, appendix, Peutz-Jeghers syndrome

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 42 : 1523—1527, 2009]

Reprint requests : Takashi Nonaka Surgical Oncology Department of Translational Medical Sciences, Nagasaki University Graduate School of Biomedical Sciences
1-7-1 Sakamoto, Nagasaki, 852-8501 JAPAN

Accepted : January 28, 2009