

症例報告

Meckel 憩室内の異所性胃粘膜が発生母地と考えられた 高分化型腺癌の1切除例

名古屋市立大学大学院医学研究科腫瘍・免疫外科学, 同 臨床病態病理学*

杉戸 伸好 桑原 義之 木村 昌弘 三井 章
石黒 秀行 安藤 拓也 呉原 裕樹 高嶋 伸宏
服部日出雄* 藤井 義敬

症例は43歳の男性で、右下腹部痛を主訴として近医受診した。急性虫垂炎様症状を呈し、保存的治療で軽快した。経過観察の腹部CTにて右下腹部の充実性腫瘍を認めた。検査所見から回腸悪性腫瘍の診断で、手術を施行した。回腸末端より約120cmにMeckel憩室を認め、憩室先端部に腫瘍が存在した。腫瘍は膀胱右側腹壁へ浸潤し、腹膜播種と思われる小結節、腸間膜リンパ節の腫脹、肝転移を認めた。手術は腫瘍を含めたMeckel憩室の切除を行った。腫瘍は病理組織学的には、高分化型腺癌で、Meckel憩室内の異所性胃粘膜と連続していた。我々は異所性胃粘膜が発生母地と考えられたMeckel憩室癌の1例を経験したので自験例を加え、本邦報告例37例の集計および文献的考察を行った。

はじめに

Meckel憩室内に発生する癌は極めてまれである。1931年にWiseley¹⁾によって初めて報告されたが、本邦では36例が報告されているにすぎない。我々はMeckel憩室内の異所性胃粘膜が発生母地と考えられた高分化型腺癌の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：43歳、男性

主訴：右下腹部痛

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：右下腹部痛で近医を受診し、急性虫垂炎、または憩室炎と診断され、抗生剤にて保存的に軽快した。その後、症状はなかったが、経過観察の腹部CTで右下腹部に腫瘍性病変を指摘され、当科受診となった。

入院時現症：腹部は平坦、軟。右下腹部、McBurneyの圧痛点よりやや尾側に弾性硬の腫瘍を触

れ、軽度の圧痛を認めた。

入院時検査所見：血液検査では白血球7,200/mm³、Hb11.3g/dl、CRP4.57mg/dlと軽度の炎症所見と貧血を認めたが、腫瘍マーカーはCEA0.8ng/ml、CA19-920.4U/mlと正常範囲であった。胸・腹部単純X線検査では特に異常を認めなかった。

腹部造影CT所見：右下腹部に内部が不均一に造影される約4.8×4.3cm大の充実性腫瘍を認めた(Fig. 1a)。また、肝S2に2.3×2.1cm大の軽度造影効果のある低吸収域を認めた(Fig. 1b)。さらに上腸間膜動脈から大動脈周囲に多数の腫大リンパ節(最大：約13mm)を認めた(Fig. 1c)。腹水の貯留はみられなかった。

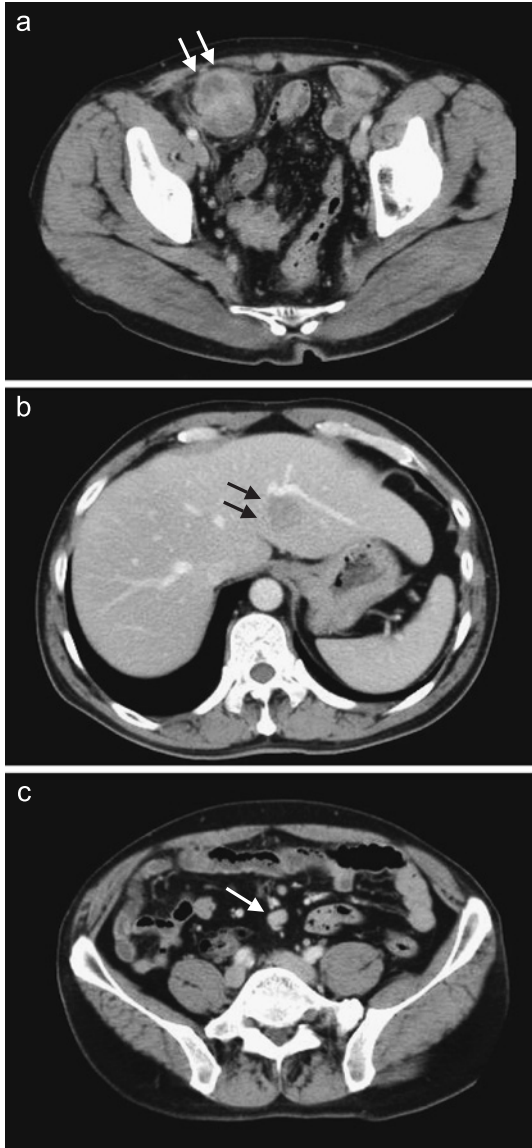
胸部CT所見：肺尖部(両側)に軽度の胸膜肥厚を認める以外には、特に異常はなかった。

以上より回腸悪性腫瘍、特に小腸のgastrointestinal stromal tumorを考え、手術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開にて開腹した。腹水は認めなかった。回腸末端より約120cm口側にMeckel憩室がみられ、腫瘍はその先端部に発生していた。腫瘍は弾性硬で、先端部は膀胱の右側の

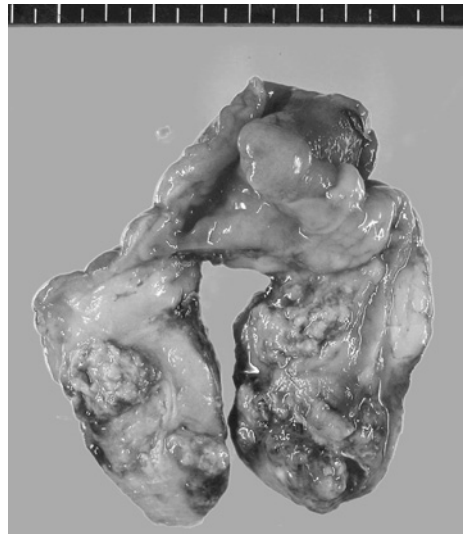
<2009年12月16日受理>別刷請求先：杉戸 伸好
〒453-0815 名古屋市守区北畑町4-1 名古屋市
立西部医療センター城西病院外科

Fig. 1 Findings of abdominal CT. a : A solid tumor (4.8×4.3cm) was found in right lower abdomen. b : Low density area (2.3×2.1cm) was found in liver. c : Para-aortic lymph nodes swelling (13mm) were found.



腹壁に強固に癒着し、その近傍には、腹膜播種巣と思われる小結節がみられた。また、小腸間膜には多数のリンパ節を、肝臓左葉には3cm大の腫瘤を触知した。手術は腫瘍を含めた Meckel 憩室の切除を行った。術中迅速病理組織学的診断では高

Fig. 2 Macroscopic finding of resected specimen showed the solid tumor (7.0×4.0cm) at the apex of Meckel's diverticulum.



分化型腺癌、断端は陰性であった。肝転移、腹膜播種、多発性腸間膜リンパ節転移、腹壁浸潤の状態と診断し、小腸切除、肝切除は施行しなかった。

切除標本肉眼所見：憩室先端に大きさ約7.0×4.0cm大の充実性腫瘍がみられた (Fig. 2)。

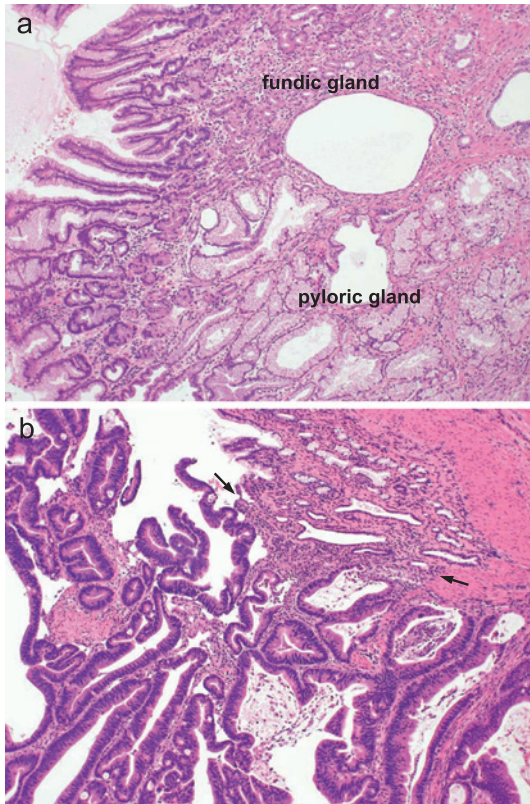
病理組織学的検査所見：憩室は全層を有する真性憩室で Meckel 憩室と診断された。憩室には胃粘膜に類似した組織が存在し、その表層部は胃の腺窩に類似していた。また、胃底腺と幽門腺も認められ、一部腺管の拡張した構造も認められた (Fig. 3a)。さらに、これらの異所性の胃組織から連続して移行するように高分化型の腺癌を認めた (Fig. 3b)。

術後経過：自験例では術後 TS-1 と CPT11 の併用療法4クールを行い、腫瘍縮小効果 (効果判定は NC) がみられたが、術後約8か月にて、本人の希望により転院となり、その後の経過は不明である。

考 察

Meckel 憩室は、胎生期の卵黄腸管 (yolk duct, vitello-intestinal duct) の遺残による先天性小腸憩室で、1809年に初めて Meckel²⁾ が発生学的、病理組織学的にその成因を明らかにしたものである。

Fig. 3 Microscopic findings of specimen. (HE×100)
 a : Ectopic tissue (gastric mucosa) was found in Meckel's diverticulum. b : The ectopic gastric mucosa made the transition to cancer tissue (Well differentiated adenocarcinoma).



Meckel 憩室の発生頻度は剖検例の0.6~2.3%³⁾で、本邦、欧米ともに約2%と考えられている⁴⁾。Meckel 憩室内に発生する腫瘍は Meckel 憩室の3~6%⁴⁾⁵⁾にみられ、発生した腫瘍の約75%は悪性腫瘍とされている。その内訳は肉腫44%、カルチノイド36%、癌腫20%と報告されており⁶⁾、Meckel 憩室内に発生する癌はきわめてまれな病態と考えられる。

医学中央雑誌において、1943年の鹽田⁷⁾の報告から、2008年12月までの期間で、「Meckel 憩室」と「悪性腫瘍」をキーワードに検索しえた報告から集計すると本邦での Meckel 憩室癌の報告は、会議録も含めわずか36例であった。今回、自験例を含めた本邦報告例37例について集計し、検討を行った (Table 1)^{5)7)~18)}。

平均年齢は56歳、男女比は4:1と男性に多かった。Meckel 憩室の部位は回腸末端から口側に35~130cm、平均77cmであった。臨床症状は、腹痛が21例と最も多かったが、腹部腫瘍6例、下血5例、嘔吐4例、腹痛以外の腹部症状7例と多彩で、非特異的なものが多かった。術前診断は困難で、多くの症例では、腹部腫瘍、小腸・腸間膜腫瘍、腸閉塞、腸管狭窄、膿瘍などの診断で手術が施行されている。術前診断のできたものは奥野ら⁸⁾のわずか1例のみであった。また、自験例のように進行してから発見される症例が多く、転移の有無についての記載のある28例のうち21例(75%)に転移がみられ、主な転移部位はリンパ節14例、腹膜7例、肝4例であった。組織型は多くが腺癌で、分化度はさまざまであったが、比較的高分化なものが多かった。

Meckel 憩室には、異所性組織の迷入がみられることが知られており、迷入組織としては胃粘膜、脾組織が多い⁹⁾。Meckel 憩室癌の発生母地として、これらの異所性組織が関与するかについて、以前より議論されてきた。Grayら¹⁹⁾は異所性迷入組織が Meckel 憩室癌の発生母地であるという説を唱えているが、癌と異所性迷入組織を同時に認めない症例が多いことから、この説に否定的な意見もある。Ewerthら²⁰⁾は母組織がすでに癌に置き換わっている例や、炎症などによって破壊されてしまっている例も少なくないと指摘しており、このような症例では、癌の発生母地について考察することは困難であるとしている。平松ら¹⁰⁾は、癌と異所性迷入組織が同時に存在するか否かではなく、異所性迷入組織と癌との移行部を確認することが、Meckel 憩室癌の発生母地を推測するうえで重要であると述べている。自験例は、① Meckel 憩室内に異所性の胃粘膜が確認できたこと、②異所性胃粘膜と高分化型腺癌との移行像が確認できたことから、癌の発生母地が異所性胃粘膜である可能性を強く示唆した症例と考えられた。

集計した Meckel 憩室癌37例のうち、異所性迷入組織の有無についての記載がある症例は30例であった。この30例中17例に異所性迷入組織がみられ、迷入組織としては胃粘膜が12例と最も多

Table 1 Summary table:36 cases of carcinoma of Meckel's diverticulum in Japanese literatures

Patients		Histological Type	
Age (mean)	56.2 ± 13.8	Papillary adenocarcinoma	5
Gender (Male/Female/Unknown)	29/7/1	Tubular adenocarcinoma	20
Chief Complaint		Poorly differentiated adenocarcinoma	3
Abdominal pain	21	Signet-ring cell carcinoma	2
Abdominal symptom (exclude abdominal pain)	7	Adenocarcinoma	8
Abdominal mass	6	Adenosquamous carcinoma	1
Melena	5	Medullary tubular adenocarcinoma	1
Vomiting	4	Well differentiated neuroendocrine carcinoma	1
Others	8	Ectopic Tissue	
Preoperative Diagnosis		Gastric mucosa	12
Tumor	22	Pancreas	3
Smal intestinal tumor	9	Vitelline duct like structure	1
Mesenteric tumor	5	Myoepithelium	1
Abdominal tumor	3	Unidentified	14
Carcinoma of Meckel's diverticulum	1	Unknown	7
Other tumor	4	Metastasis	
Ileus	5	Lymph node	14
Abscess	3	Peritoneal dissemination	7
Intestinal stenosis	2	Liver	4
Gastrointestinal perforation	2	Ovary	1
Found accidentally at surgery	2	Cervical spine	1
Undiagnosed	3	Unknown	9
Others	1		

Table 2 Summary table:9 cases with chemotherapy of carcinoma of Meckel's diverticulum in Japanese literatures

Author	Patients	Histological Type	Ectopic Tissue	Metastasis	Chemotherapy (regimen)	Prognosis
Inaba	45 M	tub	(-)	peritoneal dissemination	Sarcomycin-INAH, ThioTEPA	8M, death
Okuno	34 M	pap	gastric mucosa	LN	5-FU + CDDP + MMC	1Y1M, alive
Sugie	46 M	tub	(-)	LN	5-FU + CDDP + OK432	1Y6M, alive
Hiramatsu	62 F	sig. pap	gastric mucosa	peritoneal dissemination	not described	9M, death
Kobayashi	58 M	por, sig. pap	(-)	peritoneal dissemination	MMC (intraperitoneal injection)	1Y, death
Kido	58 M	adenoca.	unknown	peritoneal dissemination	Low dose FP	not described, aive
Oshiro	63 M	tub2	(-)	LN	5-FU + CDDP	1Y6M, alive
Narumi	55 M	tub2 >> por	(-)	liver, LN, cervical spine	TS-1, 5-FU + CDDP	2Y4M, alive
Our case	43 M	tub1	gastric mucosa	liver, peritoneal dissemination, LN	TS-1 + CPT11	8M, alive

tub:Tubular adenocarcinoma adenoca.: Adenocarcinoma 5-FU:Fluorouracil
pap:Papillary adenocarcinoma tub1: Well differentiated adenocarcinoma CDDP: cisplatin
sig: Signet-ring cell carcinoma tub2: Moderately differentiated adenocarcinoma MMC: MitomycinC
por: Poorly differentiated adenocarcinoma LN: lymph node Y: year(s) M: month(s)

かった。異所性迷入組織と癌との移行部を確認できたとする報告は自験例を含めて、3例あり¹⁰⁾¹⁷⁾、

迷入組織はいずれも胃粘膜であった。また、異所性胃粘膜に発生した潰瘍の辺縁に早期腺癌が発見

された症例の報告¹⁷⁾もみられ, Meckel 憩室癌発生の母地として異所性胃粘膜の関与が推察された.

治療は, 外科的切除が原則で, リンパ節転移が多いことから, 結腸癌に準じ腸管切除とリンパ節郭清が行われる. しかし, 腸管の切除範囲, リンパ節の郭清範囲についての一定の見解は得られていない. また, 進行例や根治術が不能な症例も多いことから, 化学療法が重要と考えられる. 化学療法の記載のあった報告について表にまとめた (Table 2)^{8)10)~16)}. 自験例を除き化学療法についての記載のあるものは8例で, そのうち使用薬剤が不明のものが1例であった. Fluorouracil と Cisplatin が最も多く使用されていたが, 化学療法の効果については報告例が少ないこともあり, 治療効果についての検討は困難と思われた.

現在では胃癌の化学療法として TS-1 と Cisplatin の併用療法などの有用性が報告されるようになっていく. Meckel 憩室癌の化学療法においても, 発生母地が異所性胃粘膜と考えられる場合は胃癌に準じた抗癌剤の選択も考慮すべきと考えられた.

文 献

- 1) Wiseley AN : Medullary carcinoma of Meckel's diverticulum. JAMA **96** : 1949—1950, 1931
- 2) Meckel JF : Ueber die divertikel am darmkanal. Arch f d physiol **9** : 421—453, 1809
- 3) Harkins HN : Intussusception due to invaginated Meckel's diverticulum : report of two cases with a study of 160 cases collected from the literature. Ann Surg **98** : 1070—1095, 1933
- 4) Leijonmarck CE, Bonman-Sandelin K, Frisell J et al : Meckel's diverticulum in the adult. Br J Surg **73** : 146—149, 1986
- 5) 田中早苗, 折田薫三, 国米欣明ほか : Meckel 憩室. 外科診療 **46** : 818—826, 1961
- 6) Weinstein EC, Dockerty MB, Waugh JM : Neoplasms of Meckel's diverticulum. Int Abstr Surg **116** : 103—111, 1963
- 7) 鹽田廣重 : メッケル氏憩室ノ癌. 日外会誌 **43** : 1482, 1943
- 8) 奥野哲二, 平井道雄, 吉田智郎ほか : 高 CEA 血症を呈した Meckel 憩室癌の 1 例. 内科 **63** : 771—774, 1989
- 9) Yamaguchi K, Maeda S, Kitamura K : Adenocarcinoma in Meckel's diverticulum : case report and literature review. Aust NZJ Surg **59** : 811—813, 1989
- 10) 平松和洋, 関本 衛, 長谷川洋ほか : Meckel 憩室より発生した腺癌の 1 例—本邦報告例 14 例の検討—. 日臨外医学会誌 **54** : 2125—2129, 1993
- 11) 杉江知治, 大垣和久, 菅 典道ほか : Meckel 憩室原発腺癌の 1 例. 日消外会誌 **24** : 930—934, 1991
- 12) 小林裕之, 井出明毅, 大西律人ほか : メッケル憩室に発生した腺癌の 1 例. 日消外会誌 **29** : 1074—1078, 1996
- 13) 大城望史, 田中恒夫, 板本敏行ほか : CA19-9 産生 Meckel 憩室癌の 1 切除例. 日消外会誌 **32** : 2144—2148, 1999
- 14) 鳴海賢二, 太田秀二郎, 奥村全史ほか : Meckel 憩室に発生した腺癌の 1 例. 日臨外会誌 **68** : 1467—1471, 2007
- 15) 稲葉 穰, 垣花昌彦, 畠山 茂 : Meckel 憩室癌の 1 例. 外科診療 **1** : 87—92, 1959
- 16) 木戸伸一, 向井伸介, 濱本隆浩ほか : メッケル憩室に原発性腺癌を合併した 1 例. 日消外会誌 **32** : 725, 1999
- 17) 富田涼一, 丹正勝久, 小豆畑丈夫ほか : Meckel 憩室に起因した急性腹症の検討. 日腹部救急医学会誌 **27** : 553—556, 2007
- 18) 高木雅代, 森本重利, 露口 勝ほか : Meckel 憩室に発生したと考えられた腺癌の 1 例. 腸疾患の臨 **5** : 39—43, 1992
- 19) Gray HK, Kernohan JW : Meckel's diverticulum associated with intussusception and adenocarcinoma of ectopic gastric mucosa. JAMA **108** : 1480—1483, 1937
- 20) Ewerth S, Hellers G, Holmström B et al : Carcinoma of Meckel's diverticulum. Acta Chir Scand **145** : 203—205, 1979

A Case of Adenocarcinoma of Meckel's Diverticulum arising from Ectopic Gastric Mucosa

Nobuyoshi Sugito, Yoshiyuki Kuwabara, Masahiro Kimura, Akira Mitsui,
Hideyuki Ishiguro, Takuya Ando, Hiroki Kurehara, Nobuhiro Takashima,
Hideo Hattori* and Yoshitaka Fujii

Department of Oncology, Immunology and Surgery and Department of Clinical Pathology*,
Nagoya City University, Graduate School of Medical Science and Medical School

Adenocarcinoma of Meckel's diverticulum is rare, with only 36 cases reported to our knowledge in Japan. A 43-year-old man seen for lower right pain and diagnosed from computed tomography (CT) with a malignant ileal tumor was found in surgery to have a 48mm tumor at the apex of Meckel's diverticulum 120cm from the ileocecal valve. The tumor had invaded the abdominal wall adjoining the right side of the bladder, presenting with dissemination, paraaortic lymph node swelling, and liver metastasis. The diverticulum and tumor were resected. Pathologically, the tumor was well-differentiated adenocarcinoma developing from Meckel's diverticulum containing ectopic gastric mucosa that may have given rise to the tumor.

Key words : Meckel's diverticulum, malignant ileal tumor, ectopic gastric mucosa

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 43 : 833—838, 2010]

Reprint requests : Nobuyoshi Sugito Department of Surgery, West Medical Center Josai Municipal Hospital,
City of Nagoya
4-1 Kitahata-cho, Nakamura-ku, Nagoya, 453-0815 JAPAN

Accepted : December 16, 2009