

症例報告

憩室を伴った虫垂粘液囊胞腺腫の一例

大賀美穂, 橋本真一, 松永尚治, 田邊 亮, 岡本健志, 西川 潤,
清水建策¹⁾, 檜垣真吾²⁾, 藤村嘉彦³⁾, 中村克衛³⁾, 小賀厚徳⁴⁾,
前田和成⁵⁾, 裕 彰一⁵⁾, 岡 正朗⁵⁾, 坂井田功

山口大学大学院医学系研究科消化器病態内科学 (内科学第一) 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)
山口大学医学部附属病院光学医療診療部¹⁾ 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)
医療法人聖比留会セントヒル病院消化器科²⁾ 宇部市今村北3-7-18 (〒755-0155)
中村内科胃腸科³⁾ 山陽小野田市日の出4-5-6 (〒756-0091)
山口大学大学院医学系研究科分子病理学分野 (病理学第二)⁴⁾ 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)
山口大学大学院医学系研究科消化器・腫瘍外科学分野 (外科学第二)⁵⁾ 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)

Key words : 虫垂粘液囊胞腺腫, 憩室

和文抄録

症例は40歳代男性。大腸癌検診で便潜血反応陽性を指摘され、大腸内視鏡検査で虫垂開口部に粘膜下腫瘍様の隆起性病変を認めた。CTエンテロクリーシスで憩室を伴った虫垂腫瘍が描出されたため、腹腔鏡下盲腸部分切除術が施行され、病理組織学的に仮性憩室を伴った虫垂粘液囊胞腺腫と診断された。虫垂粘液囊胞腺腫に憩室を伴っており、それが術前にCTで明瞭に描出されている稀な症例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

はじめに

虫垂粘液囊胞腺腫は比較的稀な疾患といわれている。特徴的な臨床症状がなく、急性腹症に対する緊急手術時に診断されることが多かった。しかし、CTや大腸内視鏡検査の普及で無症状の症例も発見されるようになり、その治療方針や手術術式についての検討が報告されるようになってきた。今回、術前検査にて診断困難である憩室を伴った虫垂粘液囊胞腺腫

がCTエンテロクリーシスにて描出された一例を経験したので、各々の解剖学的機序を踏まえ、治療方針について文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例 : 40歳代, 男性。

主 訴 : 特になし。

既往歴 : 特記事項なし。

家族歴 : 母 乳癌。

現病歴 : 大腸癌検診で便潜血反応陽性を指摘されたため、近医にて大腸内視鏡検査が施行された。虫垂開口部に粘膜下腫瘍様の隆起性病変が認められ、虫垂腫瘍が疑われたため、精査・加療目的に当院当科紹介となった。

入院時現症 : 身長 170.6cm, 体重 67.3kg, BMI 23, 体温 36.5℃, 脈拍 61/min整, 血圧 119/84mmHg, 眼球結膜に黄疸なし, 眼瞼結膜に貧血なし, 腹部は平坦・軟, 腸蠕動音は正常で腫瘍触知せず, 圧痛なく肝脾触知せず, 表在リンパ節触知せず, 下腿浮腫なし。

入院時血液生化学検査所見 (表1) : CEAやCA19-9などの腫瘍マーカーを含めて異常所見は認められなかった。

大腸内視鏡検査所見 (図1) : 前医での大腸内視鏡検査所見では虫垂開口部と思われる部位に一致して表面平滑でクッションサイン陽性の粘膜下腫瘍様の隆起を認めた. 所見から虫垂原発の腫瘍が疑われたが, 回腸末端部の狭窄も同時に認めたため, 小腸病変や骨盤内病変の除外目的で, CTエンテロクリアシスを施行した. CTエンテロクリアシスとは, 十二指腸空腸曲に造影用ゾンデを留置し水や等張性緩下剤を注入後にDynamic CTを撮影する検査方法であり, 主に小腸を評価する検査方法である.

表1 入院時血液生化学検査所見

TP	7.2	g/dl	RBC	451	$\times 10^4/mm^3$
Alb	4.7	g/dl	Ht	43.6	%
T.Bil	1.0	mg/dl	Hb	14.8	g/dl
AST	27	IU/l	Plt	17.1	$\times 10^4/mm^3$
ALT	20	IU/l	WBC	6270	/mm ³
LDH	188	IU/l	PT-INR	0.84	
ALP	180	IU/l			
γ -GTP	31	IU/l			
Amy	91	IU/l			
CRP	0.06	mg/dl	CEA	1.6	ng/dl
BUN	23	mg/dl	CA19-9	6.8	U/ml
Cre	0.89	mg/dl			
Na	141	mEq/l			
K	4.3	mEq/l			
Cl	104	mEq/l			

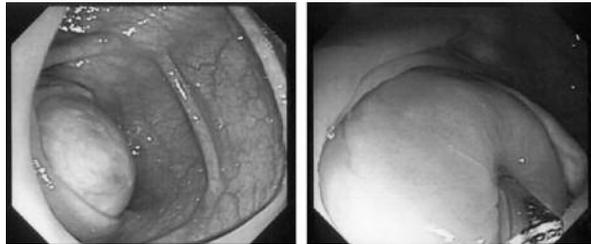


図1 大腸内視鏡検査所見

虫垂開口部と思われる部位に一致して表面平滑な粘膜下腫瘍様の隆起を認め, クッションサイン陽性であった.

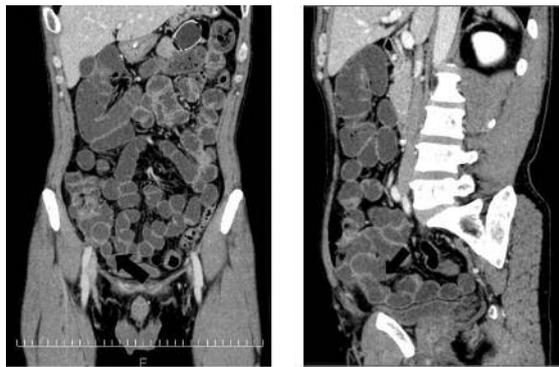


図2 CTエンテロクリアシス所見

(a) 虫垂の腫瘍は認められたが, 小腸の腸管壁肥厚や腫瘍性病変はなかった. (b) 腫瘍に軸を合わせた斜矢状断では回盲部背側に60×30×22mm大のやや楕円状の腫瘍を認めた. 内部は低吸収, 薄壁整な単房性嚢胞性腫瘍で壁に結節や充実性腫瘍の合併はみられなかった. 一部頭側に突出する小さな憩室を認めた.

CTエンテロクリアシス所見 (図2) : 虫垂の腫瘍は認められたが, 小腸の腸管壁肥厚や腫瘍性病変はなく, 明らかな器質的病変は指摘できなかった (図2a). 腫瘍に軸を合わせた斜矢状断 (図2b) では, 回盲部背側に60×30×22mm大のやや楕円状の腫瘍を認め, 内部は低吸収だった. 壁の薄い単房性嚢胞性腫瘍で壁に結節や充実性腫瘍の合併はみられなかった. 一部頭側に突出する小さな憩室を認めた.

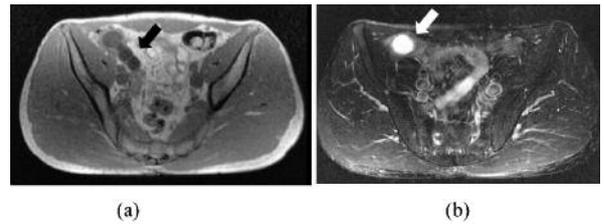


図3 MRI所見

(a) T1強調像. 内部に低信号を呈する嚢胞性病変を認めた. (b) heavily T2強調像: 内部に均一な強い高信号を呈する嚢胞性病変を認めた. CT同様に壁に結節や腫瘍性病変の合併は指摘できなかった.

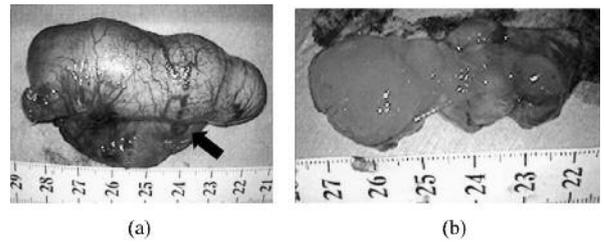


図4 手術摘出標本

(a) 虫垂はソーセージ状に腫大し, また虫垂間膜側にはCTでみられた憩室を認めた. (b) 内部は黄褐色調のゼラチン様物質が充満していた.

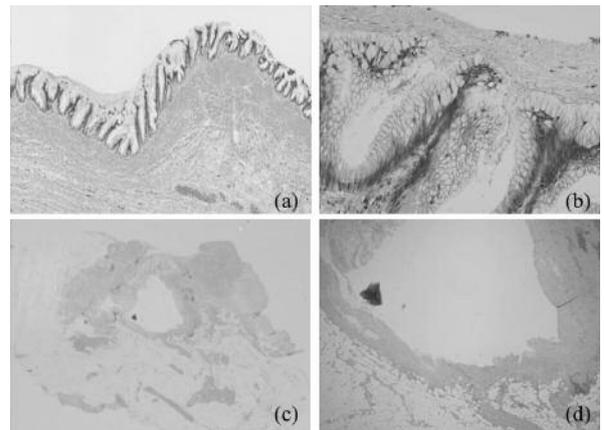


図5 病理提出標本

(a) 憩室部切除断端を含めた切片を観察すると, 粘膜上皮はほとんど消失していた. 一部に認める粘膜上皮には乳頭状の増殖を示す粘液産生上皮を認めた. (b) 細胞異型は軽度~中等度であった. (c-d) : 憩室の管腔断. 結合織成分は認めるが筋層はなく, 仮性憩室と診断された.

MRI所見（図3）：内部にT1強調像で低信号、heavily T2強調像で均一な強い高信号を呈する嚢胞性病変がみられたが、CT同様に壁在結節や腫瘤性病変の合併は指摘できなかった。

以上より虫垂の粘液嚢腫が疑われたが、良悪性の鑑別が困難であることや憩室破裂により腹膜偽粘液腫を来す可能性があることから腹腔鏡下盲腸部分切除術が施行された。

手術摘出標本（図4）：虫垂はソーセージ状に腫大し、虫垂間膜側にはCTでみられた憩室を認めた（図4a）。内部は黄褐色調のゼラチン様物質が充満していた（図4b）。

病理提出標本（図5）：憩室の穿孔・悪性細胞の有無を確認するため、術中迅速診断で憩室部を切除している。憩室部切除断端を含めた切片を観察すると、粘膜上皮はほとんど消失し（図5a）、一部に認める粘膜上皮には乳頭状の増殖を示す粘液産生上皮を認めた。細胞異型は軽度～中等度であり、虫垂粘液嚢胞腺腫と診断された（図5b）。憩室の管腔断では結合織成分は認めるが筋層はなく、仮性憩室と診断された（図5c, d）。

術後の経過は良好であり、術後7日目に退院し、以後現在まで再発や腹膜偽粘液腫は認めていない。

考 察

虫垂粘液嚢腫は虫垂根部内腔の閉塞により、その遠位内腔に粘液貯留が起きた状態と定義され¹⁾、その発見頻度は虫垂切除例の0.08～4.1%と比較的稀な疾患である^{2, 3)}。成因には①炎症や腫瘤による虫垂内腔の閉塞、②粘液産生の持続による虫垂の拡張、③内腔の無菌状態、の3条件が必要とされている。Higaらは組織学的に非腫瘍性の過形成（mucosal hyperplasia）、良性腫瘍の粘液性嚢胞腺腫（mucinous cystoadenoma）、悪性腫瘍の粘液性嚢胞腺癌（mucinous cystoadenocarcinoma）の3つに分類しており、そのうち腺腫の割合は40～60%、腺癌の割合は約10%といわれている⁴⁾。

腺腫は粘液産生性が強く、腫瘍性粘膜上皮の一部に乳頭状構造を呈することが診断に重要であると言われている⁵⁾。組織学的には良性であるが、虫垂内腔は粘液で満たされ、腺癌と同様に腹膜偽粘液腫の原因病変になりうる。一方、腺癌は組織学的に高分

化型腺癌で、リンパ行性、血行性転移は低いとされているが、虫垂壁に浸潤し、約50～60%は嚢腫の破裂、穿孔にて腹膜播種をきたし腹膜偽粘液腫を生じることが多い^{2, 6, 7, 8)}。どちらも特徴的な症状はなく、合併症としての急性腹症に対する緊急手術時に診断されることが多かったが、最近ではCTや大腸内視鏡検査の普及により無症状の症例も報告されるようになってきた。特徴的な画像所見としては、大腸内視鏡像で虫垂開口部に一致した表面平滑な粘膜下腫瘍様の隆起、CT所見で内部低吸収を示す嚢胞状の虫垂腫大、MRではT1強調像で低信号、T2で著明な高信号の腫瘍として描出される。腺癌を疑うCT所見としては、虫垂壁の異常濃染像、内部への乳頭状隆起、限局性の結節などが挙げられるが、腺腫との鑑別は非常に困難である。

腹膜偽粘液腫は、そのほとんどが虫垂や卵巣の粘液嚢腫が破裂・穿孔し、分泌能を有する細胞が腹腔内に播種され、腹腔内に粘液様物質が貯留した状態である。予後はおおむね良好であるが、悪性で腹膜偽粘液腫を合併する場合5年生存率が50%、10年生存率は20%と不良になると報告されている^{2, 9)}。

以上より、虫垂粘液嚢腫は術前に良悪性の鑑別診断をすることは非常に困難であること、腫瘍であれば良悪性に関わらず、破裂すると腹膜偽粘液腫に進展する可能性があることから、早期の外科手術が必要とされる⁸⁾。その術式としては腺癌でなければ虫垂切除か虫垂を含む盲腸部分切除を、腺癌であればリンパ節郭清を伴う回盲部切除や結腸右半切除とされている。症例に応じて手術侵襲の少ない術式から選択し、切除標本の病理組織学的結果から必要に応じて追加手術を行う治療方針が勧められており、最近ではより侵襲の少ない腹腔鏡下手術の有用性が報告されている^{15, 16)}。自験例でも、術前に良悪性の鑑別は困難であり、まず腹腔鏡下盲腸部分切除術を施行し、術中迅速診断で悪性細胞の無いことを確認して手術を終了した。

一方、虫垂憩室症はほとんどの症例において無症状で経過し、炎症・穿孔などの合併症を併発して発見されるか、他疾患の注腸造影検査時に偶然発見されることが多い。その発見率は虫垂切除例の0.002～2.1%、注腸造影検査で0.08～0.14%に過ぎない¹²⁾。成因としては、真性憩室は先天的素因によるとの説が大勢を占めるが、仮性憩室は虫垂内圧の上昇によ

り粘膜が筋層の抵抗減弱部を貫いて脱出することで発生すると言われている。筋層の抵抗減弱部としては、血管貫通路が主であるが、炎症の存在や癒痕組織なども抵抗減弱の原因となり得ることも指摘されている^{13, 14)}。自験例では粘液により虫垂が緊満していたことから、虫垂内圧の上昇により壁減弱部である虫垂間膜側の血管貫通路に憩室が生じたと考えられる。発見率は上述の通り低く、自験例のように術前にCTで明瞭に描出されることは非常に稀である。また、虫垂憩室症の特徴は合併症としての穿孔率の高さにある。本邦報告例の検討では穿孔率は35.4%で、さらに炎症が加わると42%に上昇すると報告されている^{15, 16)}。このため診断が付き次第、嚴重な経過観察もしくは外科的切除が望ましいとされる。自験例のように虫垂粘液嚢胞腺腫に憩室を合併することは稀で1983年から2010年までの医学中央雑誌で「虫垂粘液嚢腫」、「虫垂憩室」のキーワードの検索では過去に2例の報告しかみられなかった^{10, 11)}。しかし、解剖学的機序から両者の合併は自然な流れであり、今後CTの普及に伴い発見され得ると思われる。その際虫垂憩室の高い穿孔率を考慮すると、虫垂粘液嚢腫における憩室の合併は早期外科手術の必要性を示唆する根拠となると考えられた。

また、従来のCTより腸管粘膜の評価が優れているCTエンテロクリアシスを施行した事が、今回術前診断し得た一助となっている可能性もあり、今後とも検討を重ねていきたい。

結 語

虫垂粘液嚢胞腺腫に憩室を伴っており、それがCTエンテロクリアシスで明瞭に描出されている一例を経験した。虫垂憩室の高い穿孔率を考慮すると、虫垂粘液嚢腫における憩室の合併は早期外科手術の必要性を示唆する根拠となると考えられた。

引用文献

- 1) Rokitsansky KF. Beitrage zur Erkrankungender Wurmfortsatzentzündung. Wein Medizinische Presse 1866 ; 26 : 428-435.
- 2) 長谷和生, 望月英隆. 虫垂粘液嚢胞腺腫, 別冊日本臨床 消化管症候群 (下巻). 上銘外喜夫編, 日本臨床社. 大阪, 1994, 738-741.
- 3) 綿貫 詰. 虫垂. 現代外科学大系36B. 中山書店. 東京, 1970 ; 212-293.
- 4) Higa E, Rosai J, Pizzimbono CA. Mucosal hyperplasia, mucinouscystadenoma, andmucinous cystadenocarcinoma of the appendix. *Cancer* 1973 ; 32 : 1525-1541.
- 5) 柴田佳久, 深谷昌秀. 腸重積にて発症した虫垂粘液嚢胞線腫の1例. 日本消化器外科学会雑誌 2001 ; 34 : 272-276.
- 6) Andersson A, Bergdahl L, Boquist L. Primary carcinoma of the appendix. *Ann Surg* 1976 ; 183 : 53-57.
- 7) 村上茂樹, 竹林隆介, 竹田正範他. MDCTが有用であった腸重積合併虫垂粘液嚢胞線腫の1例. 日本消化器外科学会雑誌 2007 ; 40 : 467-472.
- 8) 斎藤 健, 清水英夫, 石橋久夫. 虫垂腫瘍の病理-虫垂粘液嚢腫 (mucocele) を中心に. 胃と腸 1990 ; 25 : 1177-1184.
- 9) 亀山雅男, 村田幸平, 土岐祐一郎, 石川 治. 腹膜偽粘液腫. 外科治療 2001 ; 85 : 331-337.
- 10) 宮川乃里子, 中川国利, 藪内伸一. 腹腔鏡下虫垂切除術を施行した憩室合併虫垂粘液嚢腫の1例. 外科 2008 ; 70 : 1238-1241.
- 11) 鶴田 豊, 杉原重哲, 外山栄一郎. 腹腔鏡下切除術を行った虫垂憩室症の1例. 臨床外科 2005 ; 60 : 1329-1331.
- 12) 岡本貫大, 田村竜二, 門脇嘉彦. 虫垂憩室症の臨床病理学的検討. 日本大腸肛門病会誌 2009 ; 62 : 506-510.
- 13) 別宮慎也, 望月英隆, 寺畑信太郎. 虫垂憩室炎, 別冊日本臨床 消化管症候群 (下巻). 上銘外喜夫編. 日本臨床社. 大阪, 1994 ; 702-704.
- 14) 橋詰倫太郎, 有福幸徳, 山村卓也, 山口 晋, 打越敏之. 虫垂粘液嚢腫に併存した虫垂憩室にみられた微小虫垂癌の1例. 手術 1998 ; 52 : 901-904.
- 15) 佐々木大輔. 大腸内圧と大腸壁の病理. 大腸憩室疾患, 吉田 豊, 井上幹夫編. 南山堂. 1990 ; 102.
- 16) 武川 悟, 國井康弘, 岡田 豪他. 虫垂憩室の検討. 日本大腸肛門病会誌 2000 ; 53 ; 456-460.

A Case of Mucinous Cystadenoma of the Appendix with Diverticulum.

Miho OOGA, Shinichi HASHIMOTO,
Takaharu MATSUNAGA, Ryo TANABE,
Takeshi OKAMOTO, Jun NISHIKAWA,
Kensaku SHIMIZU¹⁾, Shingo HIGAKI²⁾,
Yoshihiko FUJIMURA³⁾, Katsue NAKAMURA³⁾,
Atsunori OGA⁴⁾, Kazunari MAEDA⁵⁾,
Shouichi HAZAMA⁵⁾, Masaaki OKA⁵⁾
and Isao SAKAIDA

Gastroenterology and Hepatology (Internal Medicine I.), Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan 1) Department of Gastroenterological Endoscopy, Yamaguchi University Hospital, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan 2) Department of Gastroenterology and Hepatology, Sainthill Hospital, 3-7-18 Imamura, Ube, Yamaguchi 755-0155, Japan 3) Department of Gastroenterology and Hepatology, Nakamura Hospital, 4-5-6 Hinode, Sanyoonoda, Yamaguchi 756-0091, Japan

4) Molecular Pathology (Pathology II.), Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan 5) Digestive Surgery and Surgical Oncology (Surgery II.), Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan

SUMMARY

Herein we will report on a rare case in which a diverticulum in an appendiceal mucinous cystadenoma was clearly rendered by a preoperative CT scan. A forty-year-old man came to our hospital and in screening for colorectal cancer was found to be fecal occult blood positive. Colonoscopy revealed a submucosal tumor-like lesion with an encircling fold at the ostium of the appendix. CT enteroclysis showed an appendix cyst localized on the diverticulum, and after a laparoscopic segmentectomy was performed, it was diagnosed histopathologically as being a false diverticulum with an appendiceal mucinous cyst.