症例報告

子宮および両側付属器摘出術 13 年後に発症した虫垂子宮内膜症の 1 例

舞鶴共済病院外科, 福井大学附属病院第一外科¹⁾, 同 病理部²⁾

佐藤 嘉紀 木村 俊久 中澤 俊之 小畑 真介
竹内 一雄 山口 明夫¹⁾ 今村 好章²⁾

今回, 子宮および両側付属器摘出術 13 年後に発症した虫垂子宮内膜症の 1 例を経験したので報告する. 患者は 60 歳の女性で, 既往歴は 47 歳時に子宮筋腫で子宮および両側付属器摘出術を施行されている. 平成 20 年 9 月, 右下腹部痛を主訴に受診し腹部 CT を施行したところ虫垂穿孔を否定できず緊急手術をおこなった. 虫垂は発赤し壁肥厚化しており虫垂を根部にて切除した. 病理組織学的診断では虫垂は委縮しており, 粘膜上皮はほとんど認められなかった. 壁には慢性炎症と拡張した腺腔構造を呈する子宮内膜組織が内膜間質を伴って認められた. また免疫染色検査でエストロゲンレセプターが陽性, またプロゲステロンレセプターも一部陽性であり, 虫垂子宮内膜症と診断した. 虫垂子宮内膜症は通常性成熟期に多く, 閉経後は報告例も少ない. さらに, 子宮および両側付属器摘出 10 数年後に発見された報告もなく貴重な症例であると考えられた.

はじめに

腸管子宮内膜症は全子宮内膜症の約 12% に発生するといわれ, 好発部位は直腸・S 状結腸に多く, 虫垂は約 3% と報告されている. また, 好発年齢は性成熟期で, 初潮以前や閉経後には少ないとされる¹⁾.

今回, 子宮および両側付属器摘出術 13 年後に発見された, 60 歳の患者の虫垂子宮内膜症の 1 例を経験したので報告する.

症 例

患者: 60 歳, 女性

主訴: 右下腹部痛

既往歴: 47 歳時に子宮筋腫で子宮および両側付属器摘出術. 59 歳時に MVR で弁置換術.

内服: ワルファリンカリウム, 塩酸ピルジカイニド, ホルモン製剤の内服なし.

現病歴: 平成 20 年 9 月, 腹痛に対し近医で抗菌薬を投与されるも改善なく, 4 日後に当院内科を受診し, 腹部 CT にて急性虫垂炎を疑われ当科に紹介となった.

入院時現症: 身長 160cm, 体重 50Kg, 体温 37°C 腹部所見では右下腹部に圧痛および筋性防御を認めた. 腫瘍は触知しなかった. 下腹部正中に切開創を認めた.

入院時血液所見: WBC 9,400/ μ l, CRP 8.5mg/dl と炎症所見を認めた. その他異常所見を認めなかった.

腹部造影 CT: 回盲部周囲の腸管の著明な壁肥厚, 糞石を疑わせる石灰化, 周囲の腸間膜の脂肪濃度の上昇, 盲腸周囲の液体貯留を認めた (Fig. 1).

術前診断: CT では虫垂の同定は困難であったが, 虫垂穿孔の可能性も否定できず, 緊急開腹手術を行った.

手術所見: 回腸末端から盲腸にかけて炎症と思われる壁肥厚を認めた. 虫垂も発赤し壁肥厚していたが, 虫垂と盲腸との壁肥厚の境界は不明瞭であり, 回盲部に明らかな腫瘍は触知しなかった. よって回盲部の炎症は虫垂炎が波及したものと考え, 虫垂切除を施行した.

摘出標本: 虫垂は肥厚短縮しており, 3.0×1.2 cm であった. 肉眼的には蜂窩織炎性の虫垂炎と

Fig. 1 The abdominal CT also revealed marked thickening of the intestinal wall surrounding the ileocecal region, with calcification, presumably a fecal calculus, elevated lipid levels in the surrounding mesentery, and fluid retention.

Fig. 2 A photograph of the excised specimen shows a short thickened appendix.

思われた (Fig. 2).

病理組織学的所見：虫垂は委縮し、粘膜上皮はほとんど認められなかった。壁には慢性炎症と、拡張した腺腔構造を呈する子宮内膜組織が内膜間質を伴って認められた。また、免疫染色検査でエストロゲンレセプターが陽性であり、プロゲステロンレセプターも一部陽性であったため虫垂子宮内膜症と診断した (Fig. 3, 4)。

術後経過：術後経過は良好で、ワーファリンコントロール終了後の術後12日目に退院した。

Fig. 3 Histopathological examination of the resected specimen revealed loss of mucosal epithelium of the appendix. Evidence of chronic inflammation and presence of endometrial tissue, with enlarged glandular cavities and endometrial stroma, were observed in the wall of the resected appendix.

Fig. 4 Immunohistochemistry of the endometrial tissue in the appendiceal wall revealed positive staining for the estrogen receptor and weakly positive staining for the progesterone receptor.

Table 1 Case reports of appendiceal endometriosis in a menopausal woman in the Japanese literature (1983-2009)

No.	Author (Reference)	Date	Age	Past history	Term after menopause	Hysterectomy
1	Nishida 14)	1991	68	Exploratory laprotomy	24 years	(-)
2	Sato 15)	1993	47	(-)	1 year	(-)
3	Yamazaki 27)	1998	60	Caesarean section	No description	(-)
4	Iriguchi 33)	2002	63	(-)	No description	(-)
5	Shibata 40)	2007	57	(-)	2 years	(-)
6	Our case	2009	60	Uterus myoma	13 years	(+)

考 察

子宮内膜症は生殖年齢婦人の5~10%に発症するといわれている。成因として子宮内膜移植説や体腔上皮化生説があるが、その発生機序は明確ではない²⁾。しかし、子宮内膜症の発症および進展には数々の因子が複雑に関連しているといわれ、そのような因子として月経、年齢的要因、性ステロイド、サイトカインや炎症さらには免疫、遺伝的素因も関係する可能性があると考えられる³⁾。

異所性子宮内膜症には明確な定義はないが、一般に子宮内膜の組織が女性生殖器以外の臓器に存在するものとされ⁴⁾、病変が腸管に存在する場合に腸管子宮内膜症と呼ばれる。消化管における好発部位は直腸・S状結腸が約72%、小腸7%、盲腸3.6%、虫垂3%と報告されている¹⁾。

腸管子宮内膜症の成因としては後述するが子宮内膜移植説⁵⁾など諸説がある。好発年齢は30~40歳代の性成熟期で、初潮以前や閉経後には少ないとされる。

虫垂子宮内膜症の本邦報告例は医学中央雑誌で1983年から2009年2月まで「虫垂子宮内膜症」、「腸管子宮内膜症」、「異所性子宮内膜症」をキーワードとして検索したところ45症例であった^{6)~51)}(会議録は除く)。平均年齢は39歳であった。子宮摘出後の症例は西崎らが報告した、子宮摘出術1年後に発症した症例(両側付属器摘出に関しては不明)³¹⁾と本症例の2症例のみであった。

一方、閉経後の症例は自験例を含め6症例のみであり(Table 1)¹⁴⁾¹⁵⁾²⁷⁾³³⁾⁴⁰⁾、閉経後の短期間に発症している症例が多い傾向にあった。また、それらのうち閉経後数年後に発症したと思われる症例は

既往歴に子宮内膜症がある症例¹⁴⁾と、以前に開腹手術歴がある症例¹⁵⁾が含まれていた。

本症例は当初、虫垂炎を疑い手術を施行し、病理組織診断の結果、虫垂子宮内膜症であることが判明した。また、13年前に子宮筋腫の診断で子宮全摘術+両側付属器摘出術が施行されており(病理診断で悪性所見は認めなかった)、子宮摘出後の虫垂子宮内膜症の本邦2例目の症例と考えられた。

子宮摘出後の異所性子宮内膜症の本邦報告例は医学中央雑誌で「異所性子宮内膜症」および「子宮摘出後」をキーワードとして1983年から2009年2月まで検索したところ横隔膜異所性子宮内膜症の1症例のみであり、子宮摘出後の期間は2年であった⁵²⁾。子宮摘出後より10年以上経過した後に異所性子宮内膜症として診断された症例は本症例のみであり貴重な症例であると考えられた。

腸管子宮内膜症の成因としては、何らかの原因で子宮内膜が移植される、①経卵管移植説：月経血が卵管經由で腹腔内に逆流、②転移性移植説：脈管・リンパ管で輸送、③直接・機械的移植説、などの説や、④体腔上皮化生説：胎生期の体腔上皮化生、⑤胎生上皮由来説：胎生期のウォルフ管やミュラー管の遺残、などがあり¹⁾、その中でも①の経卵管移植説が最近有力であるとされているが、それ以外にも異なった発生原因が存在する可能性もあるとされる。以上をもとに本症例の成因を考察すると、本症例は子宮摘出術13年後と長期間を経て発見されており、さらに、いつ虫垂に子宮内膜組織が発生したのかも不明であるため、経卵管移植説のみでは発生原因を特定できないと思

われる。また、帝王切開後に腹壁手術創に異所性子宮内膜症を生じた報告症例もあり⁵³⁾、本症例で子宮摘出術が施行されていることを考慮すると、手術時に虫垂の漿膜面に子宮内膜片が付着し子宮内膜組織が増殖した直接・機械的移植説の可能性もある。ただし、子宮摘出後の長期にわたり内膜細胞が増殖していたかは不明である。

さらに、閉経後にも子宮内膜症が発症する原因として、エストロゲン投与や卵巣のエストロゲン産生腫瘍があるとされるが、多くは原因不明である¹⁴⁾。特に本症例のように子宮および両側付属器摘出術13年後にホルモン剤投与のない患者に虫垂子宮内膜症が発症したことから、子宮内膜組織に活動性を与えるホルモンなどの因子が卵巣以外にもありうることも推測される。

また、子宮内膜症の発症について関与するサイトカインが子宮内膜症の発症そのものの以外にも子宮内膜症の増殖・進展に重要な役割を果たすとされ、さらに卵管を経て逆血した月経血により骨盤内の炎症が起こったときにもマクロファージが動員され、それよりサイトカインが分泌され、これらが子宮内膜症の増殖・進展に関与するとされている³⁾。

さらに、子宮内膜症の中には長期間にわたって活動性を維持するものもあり、そのような子宮内膜症は深部浸潤性をもち直腸や膀胱などに浸潤していく子宮内膜症腫と呼ばれる腫瘤を形成し、強い臨床症状を呈するといわれている。ただし、その活動性は閉経後などの低エストロゲン環境は低下するとされる³⁾。

以上より、閉経後長期を経て子宮内膜症が発症した理由として、性成熟期に虫垂子宮内膜症が発症し、活動性を維持していたものの、子宮摘出により低エストロゲン環境下で活動性が低下していたが、その後骨盤内腹膜炎などの何らかの炎症やサイトカインなどのエストロゲン以外の因子により内膜症の進展・増殖や活動性がじゃっ起されたという推測もできる。

腸管子宮内膜症の治療方法には手術療法と薬物療法がある。手術療法も発生部位、症状、年齢などにより腸管病巣の切除に加え、子宮全摘・両側

付属器摘出術が行われる。ただし、術前より腸管子宮内膜症の診断が得られていることは少なく、2次的に追加手術が行われることが多い。また、薬物療法に関しては術後の疼痛緩和や再発予防目的にGnRHを投与する場合もあるが、本症例は子宮および両側付属器は摘出済みであり、術後の疼痛などの訴えもないため、薬物療法は行わなかった。

文 献

- 1) 小平 進：腸管子宮内膜症の病態。胃と腸 33：1323—1328, 1998
- 2) 百枝幹夫：子宮内膜症をめぐる最近の話題。産婦治療 96：229—233, 2008
- 3) 杉並 洋：子宮内膜症の発症とその機序。産婦治療 96：234—240, 2008
- 4) 浅田弘法, 古谷正敏, 西尾 浩ほか：異所性子宮内膜症。産婦治療 96：241—247, 2008
- 5) Sampson JA：Intestinal adenomas of endometrial type. Arch Surg 5：217—280, 1922
- 6) 康 権三, 勝見正治, 竹井信夫ほか：子宮内膜症の2例。日本大腸肛門病会誌 38：386—390, 1985
- 7) 奈良井省吾, 大塚為和, 近藤公男：虫垂子宮内膜症の1例。日臨外医会誌 48：2051—2055, 1987
- 8) Nakatani Y, Hara M, Misugi K et al：Appendiceal endometriosis in pregnancy. Report of case with perforation and review of the literature. Acta Pathol Jpn 37：1685—1690, 1987
- 9) 越後義成, 倉塚 均, 長廻 練：虫垂 Endometriosis の1例。島根県中病医誌 16：55—59, 1989
- 10) 千福貞博, 後藤研三, 吉岡貞治ほか：虫垂に発生した子宮内膜症の1例。日赤医 41：131—133, 1989
- 11) 深澤洋幸, 岡本美枝, 成島正昭ほか：虫垂より発生したと考えられる内膜症性嚢胞を有する回盲部子宮内膜症の1例。産と婦 6：1379—1383, 1989
- 12) 藤沢秀樹, 千見寺徹, 水谷正彦ほか：急性虫垂炎症状を呈した虫垂子宮内膜症の1例。日消外会誌 23：1928—1931, 1990
- 13) 中川辰郎, 養田俊之, 尹 太明ほか：急性虫垂炎に合併した虫垂子宮内膜症の1例。外科診療 33：1541—1544, 1991
- 14) 西田禎宏, 裏川公章, 中本光春ほか：十二指腸との内瘻を伴った虫垂子宮内膜症の1例。日消外会誌 24：3022—3026, 1991
- 15) 佐藤篤司, 片岡 誠, 桑原義之ほか：子宮内膜症に起因した急性虫垂炎の1例。日臨外医会誌 54：1281—1284, 1993
- 16) 沖 利通, 森 明人, 中村佐知子ほか：急性虫垂炎様の症状を呈した子宮内膜症の1症例。エンドメトリオージス研会誌 14：190—193, 1993
- 17) 小出直彦, 伴在 隆, 河原 勇ほか：虫垂重積症を伴った虫垂子宮内膜症の1例。臨床外科 48：121—125, 1993

- 18) 豊成由佳, 武内裕之, 淡路正則ほか: 卵巣チョコレート嚢胞に虫垂子宮内膜症を合併した一例。腹腔鏡下に嚢胞摘出術および虫垂切除術を施行した症例。日産婦東京会誌 44: 165—169, 1995
- 19) 二村孝典, 山田幸治, 井田 守ほか: ダナゾール投与中に増悪した虫垂子宮内膜症の1症例。産と婦 62: 1623—1627, 1995
- 20) 中山光由: 虫垂エンドメトリオーシスの1例。虫垂エンドメトリオーシスと骨盤内観察の必要性。外科 57: 1234—1236, 1995
- 21) Sakaguchi N, Ito M, Sano K et al: Intussusception of the appendix: A report of three cases with different clinical and pathologic features. Pathol Int 45: 757—761, 1995
- 22) 大久保雅之, 寺崎正起, 清水泰博ほか: 虫垂嚢胞性腫瘍と鑑別が困難であった虫垂子宮内膜症の1例。静岡済生会総合病医誌 12: 23—27, 1995
- 23) 中山 肇, 小川 清, 奥井勝二ほか: 虫垂子宮内膜症の腹腔鏡下切除の1例。日臨外医会誌 57: 2013—2015, 1996
- 24) 楠 信也, 石田 武, 西村良彦ほか: 腸閉塞及び虫垂炎で発症した腸管子宮内膜症の2例。日臨外医会誌 57: 1459—1462, 1996
- 25) 澤田 傑, 石川 真, 関野昌宏: 虫垂子宮内膜症が原因となった虫垂重積の1例。日消外会誌 30: 2034—2038, 1997
- 26) 加藤秀明, 宗本義則, 林 泰生ほか: 虫垂子宮内膜症穿孔の1例。日腹部救急医会誌 18: 573—575, 1998
- 27) 山崎聖二, 小森山広幸, 根本 賢ほか: 虫垂に発生した子宮内膜症の1例。日臨外会誌 59: 1382—1384, 1998
- 28) 山本雄治, 平田公一: 虫垂および回腸子宮内膜症の1例。日臨外会誌 60: 2418—2422, 1999
- 29) 宮本康二, 林田有市, 高木 博ほか: 腹腔鏡下手術中に認められた虫垂子宮内膜症の1例。臨外 55: 265—268, 2000
- 30) 安川十郎, 金泉年郁, 鎌田喜代志ほか: 急性虫垂炎にて偶然発見された虫垂子宮内膜症の1例。日外科系連会誌 25: 681—683, 2000
- 31) 西崎 浩, 山本健二, 切塚敬治: 虫垂に発生した腸管子宮内膜症の1例。神戸病紀 39: 91—94, 2000
- 32) 高瀬 真, 炭山嘉伸, 渡辺 学ほか: 虫垂重積をきたした虫垂子宮内膜症の1例。日消外会誌 34: 1457—1460, 2001
- 33) 入口陽介, 細井董三, 山村彰彦ほか: 虫垂重積を形成した虫垂子宮内膜症の1例。胃と腸 37: 1349—1356, 2002
- 34) 畑 泰司, 衣田誠克, 池永雅一ほか: 胃癌手術時に偶然発見された虫垂子宮内膜症の1例。臨外 59: 93—96, 2004
- 35) 小林真一郎, 岡村寛子, 村山康利ほか: 急性虫垂炎として緊急手術を要した子宮内膜症の1例。日腹部救急医会誌 24: 961—964, 2004
- 36) 住田 啓, 上松俊夫, 秋山裕人ほか: 繰り返す右下腹部痛を主訴とした虫垂子宮内膜症の1例。稲沢市民病紀 8: 48—51, 2004
- 37) 西科琢雄, 種村廣巳, 大下裕夫ほか: 重積を伴った虫垂子宮内膜症の1例。日外科系連会誌 30: 83—86, 2005
- 38) 吉良慎一郎, 加島健司, 駄阿 勉ほか: 虫垂脱落膜症の1例。診断病理 22: 166—168, 2005
- 39) 森 周介, 岸本浩史, 田内克典: 下血で発症した虫垂子宮内膜症の1例。日臨外会誌 67: 1805—1809, 2006
- 40) 柴田智隆, 唐原和秀, 和田伸介ほか: 急性虫垂炎として切除した閉経後虫垂子宮内膜症の1例。日本大腸肛門病会誌 60: 89—94, 2007
- 41) 馬場秀雄, 及川 太: 完全型虫垂重積を呈した虫垂子宮内膜症の1例。日本大腸肛門病会誌 60: 264—268, 2007
- 42) 小林秀昭, 水崎 馨, 斉藤英一: 虫垂子宮内膜症の1例。日臨外会誌 68: 916—918, 2007
- 43) 原田幹彦, 大原正己: 腸閉塞, 虫垂炎で発症した虫垂・回腸子宮内膜症の1例。日消外会誌 40: 1630—1635, 2007
- 44) Idetsu A, Ojima H, Saito K et al: Laparoscopic Appendectomy for Appendiceal Endometriosis Presenting as Acute Appendicitis: Report of a Case. Surg Today 37: 510—513, 2007
- 45) 奥野茜子, 中嶋達也, 吉田桃子ほか: 急性虫垂炎との鑑別を要した卵巣および虫垂の子宮内膜症の1例。エンドメトリオーシス研会誌 28: 122—125, 2007
- 46) 渡辺啓太郎, 佃 和憲, 高木章司ほか: 回腸閉塞をきたした虫垂子宮内膜症。日臨外会誌 69: 2030—2033, 2008
- 47) 久野 敦, 奥 久人, 棚瀬康仁ほか: チョコレート嚢胞に対する腹腔鏡下手術の際に判明した虫垂子宮内膜症の2症例より—腹腔鏡下に虫垂切除術も施行—。エンドメトリオーシス研会誌 29: 137—141, 2008
- 48) 加藤達矢, 工藤正尊, 西 信也ほか: 子宮内膜症に対する腹腔鏡下手術の際に認められた虫垂子宮内膜症の5例。エンドメトリオーシス研会誌 29: 142—146, 2008
- 49) 吹野信忠, 川崎篤史, 三松謙司ほか: 虫垂子宮内膜症による虫垂重積症の1例。日臨外会誌 70: 1099—1103, 2009
- 50) 若杉正樹, 平田 泰, 南村圭亮ほか: 虫垂子宮内膜症の1例。臨外 64: 683—686, 2009
- 51) 鈴木茉衣子, 久納孝夫, 尾上重巳ほか: 術前診断に難渋した虫垂子宮内膜症を伴った卵管留膜症の1例。臨婦産 63: 1093—1096, 2009
- 52) 西井鉄平, 正津昌子, 前原孝光ほか: 子宮摘出および両側付属器摘出後に再発した, 横隔膜異所性子宮内膜症の1例。日呼外会誌 22: 50—54, 2008
- 53) Luisi S, Gabbanini M, Sollazzi S et al: Surgical scar endometriosis after Cesarean section: A case report. Gynecol Endocrinol 22: 284—285, 2006

**A Case of Appendiceal Endometriosis occurring 13 years after Hysterectomy
with Bilateral Adnexectomy**

Yoshiki Sato, Toshihisa Kimura, Toshiyuki Nakazawa, Shinsuke Obata,

Kazuo Takeuchi, Akio Yamaguchi¹⁾ and Yoshiaki Imamura²⁾

Department of Surgery of Maizuru Kyosai Hospital

1st Department of Surgery Faculty of Medicine¹⁾ and

Division of Surgical Pathology of Medicine²⁾, University of Fukui

We report a case of appendiceal endometriosis occurring over 13 years after hysterectomy with bilateral adnexectomy. A 60-year-old woman who had undergone this hysterectomy for uterine myoma at age 47 was seen in September 2008 for lower right abdominal pain. Abdominal computed tomography indicated possible appendiceal perforation, necessitating emergency surgery, which showed erythematous appendix with a thickened wall. After appendectomy removing the appendix at the root, histopathological examination showed an atrophic appendix with mucosal epithelial loss. The resected appendix wall evidenced chronic inflammation and endometrial tissue, with enlarged glandular cavities and endometrial stroma. Immunohistochemistry of endometrial tissue showed positive staining for the estrogen receptor and weakly positive staining for the progesterone receptor, yielding a final diagnosis of appendiceal endometriosis. Appendiceal endometriosis occurs predominantly in reproductive-age women and is rarely reported in those postmenopausal. No reports have been published, to our knowledge, of appendiceal endometriosis occurring over a decade after hysterectomy with bilateral adnexectomy, making ours an interesting case worth reporting.

Key words : appendiceal endometriosis, after hysterectomy

[Jpn J Gastroenterol Surg 43 : 1170—1175, 2010]

Reprint requests : Yoshiki Sato Department of Surgery of Maizuru Kyosai Hospital

1035 Aza Hama, Maizuru, 625-8585 JAPAN

Accepted : April 28, 2010