症例報告

完全型虫垂重積症を来した早期虫垂癌の1例

富山通信病院外科, 富山大学消化器・腫瘍・総合外科*

横山 義信 大上 英夫 南村 哲司* 塚田 一博*

完全型虫垂重積症を来した早期虫垂癌の1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。患者は96歳の女性で、下血のため精査を受けた。注腸造影検査・大腸内視鏡検査にて盲腸腫瘍を認め、腹部CTにてtarget signを認めた。盲腸腫瘍による腸重積が疑われたため、回盲部切除術を行った。切除標本の病理組織学的検索では盲腸内に完全に翻転重積した管状絨毛腺腫内虫垂癌(M, ly0, v0, N0, stage 0)であった。虫垂重積症を来した虫垂癌を術前に確定診断することは難しいが、大腸内視鏡検査にて盲腸腫瘍を認める場合には、本症も鑑別として考え、CTや注腸造影所見等とあわせて判断すれば、診断は可能であると思われた。虫垂重積症を来した虫垂癌の報告例は早期癌や腺腫内癌が大部分を占めていることから、リンパ節転移を認めなければ、縮小手術も適応になると考えられる。

はじめに

原発性虫垂癌は比較的にまれな疾患であり¹⁾、術前診断が困難で大部分は回盲部腫瘍・急性虫垂炎・盲腸周囲膿瘍などで発見され、その時にはすでに進行癌であることが多い。また、虫垂重積症も非常にまれな疾患であり²⁾、原因や形態はさまざま、症状も非特異的であるため術前診断に苦慮する人が多い。なかでも虫垂癌を先進部とするものは極めて少ない。我々は完全型虫垂重積症を来した早期虫垂癌の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：96歳、女性

主訴：下血

既往歴：認知症

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成17年8月より下血が出現したため、9月当院へ紹介入院となった。

入院時現症：軽度の貧血を認めた。表在リンパ節は触知せず。腹部は平坦・軟で、腫瘍は触知せず。

入院時検査所見：赤血球数 $355 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Hb 10.6g/dl、Ht 29.5%と軽度の貧血を認めた。TP 5.4g/dl、ALB 3.0g/dlと低蛋白血症を認めた。腫瘍マーカーは正常範囲内であった。

腹部超音波検査：右腹部にtarget signを認めた (Fig. 1)。

腹部CT：リンパ節転移、肝転移は認められず、上行結腸～盲腸にtarget signを認めた (Fig. 2)。

下部消化管内視鏡検査：盲腸に棍棒様腫瘍があり、肛門側へ伸びていた。生検ではTubulovillous adenomaであった (Fig. 3)。

注腸造影検査：盲腸から上行結腸にかけて棍棒状の陰影欠損を認めた。虫垂は造影されなかった (Fig. 4)。

以上より、盲腸腫瘍による腸重積症の診断にて、平成17年10月に腰椎麻酔下に回盲部切除術(D1)を施行した。

手術所見：腹水はなく、肝転移や腸間膜のリンパ節の腫大なども認めなかった。回盲部では虫垂が確認できず、本来虫垂の存在すべき部位において漿膜の盲腸内への陥入を認めたため、術前盲腸腫瘍と考えていたものは虫垂腫瘍が内翻したものと診断した。

摘出標本：盲腸内に突出する棍棒状腫瘍として

<2009年9月16日受理>別刷請求先：横山 義信
〒930-8798 富山市鹿島町2-2-29 富山通信病院外科

Fig. 1 Ultrasonographic scan revealed a target sign in the rt. abdomen.

Fig. 2 Abdominal computed tomography revealed a cecal mass with a target sign.

認められ、虫垂が盲腸内腔に翻転していた。その根部から先端までの粘膜は粗造で、大きさ 80×30 mm の腫瘍を認めた (Fig. 5)。

以上より、虫垂腫瘍を先進部とする完全型原発性虫垂重積症と診断した。

病理組織学的検査所見：翻転して盲腸腔へ突出する虫垂表面は腫瘍化した粘膜に被覆される (Fig. 6a)。その大半は高度異型の管状絨毛腺腫で占められ、先端側の小部分で細胞異型、構造異型を増して高分化型腺癌に移行している (Fig. 6b)。

Fig. 3 Colonofiberscopy revealed pedunculated polypoid mass with an irregular surface : the mass extended from the cecum to the ascending colon.

浸潤性は乏しく、粘膜内に止まり、リンパ節 (#201) 転移も指摘されない。診断は Well-differentiated adenocarcinoma (tub1, pM, ly0, v0, pN0) in tubulovillous adenoma であった。

術後経過：経過は良好で、術後 23 日目に退院した。

Fig. 4 Barium enema revealed a tumor shadow with an irregular defect in the cecum. The appendix vermiformis was not visualized.

Fig. 5 The resected specimen revealed a completely inverted appendix with a mushroom-like appearance in the lumen of the cecum. The appendiceal tumor (indicated by the arrow heads) measured 80mm×30mm. The arrow indicates the tip of the appendix.

考 察

虫垂重積症は非常にまれな疾患であり，発生頻度は Collins²⁾の報告によれば，手術例，剖検例を含めて 0.01% で非常に少ない．その発生機序は解剖学的要因として虫垂の發育不全，広い虫垂内腔，虫垂間膜の菲薄化や欠損による固定不良などが，また病態生理学的要因として虫垂の異物，糞石，ポリープ，粘液嚢腫，腺腫，癌などがその原因と

Fig. 6 a: Microscopic examination revealed the completely inverted tumorous appendix (Hematoxylin-Eosin staining; Loupe). b: Microscopic examination revealed the border area of a tubulovillous adenoma (lower right) and a well-differentiated adenocarcinoma (upper left) near the tip of the appendiceal intussusception (original magnification, 40×).

して考えられ，異物や腫瘍を排除しようとする異常な蠕動運動により粘膜の重積を来すと推察されている³⁾．自験例では腺腫内虫垂癌を要因として発生したものと考えられた．本邦での虫垂癌を要因とした虫垂重積症の報告はきわめて少ない．

1983 年から 2008 年までに「虫垂重積症 or 腸重積症」「虫垂癌 or 虫垂腫瘍」をキーワードとして医学中央雑誌（会議録を除く）および PubMed を用いて我々が検索しえた報告例は 72 例である．そのうち虫垂重積症を来した虫垂癌症例は自験例を含めて 13 例にすぎない^{4)~15)} (Table 1)．

虫垂重積症の形態分類には Atkinson ら¹⁶⁾の用いた分類が有用と思われる．まず，盲腸や回盲部

Table 1 The reported cases of intussusceptions induced by appendiceal carcinoma in Japan

No	Author	Year	Age/Sex	Type	Preoperative diagnosis	Pathology	Depth	Treatment
1	Okada ⁴⁾	1990	17 F	E	Cecal cancer	Tub2	SS	Rt. Hemicolectomy
2	Miyahara ⁵⁾	1995	40 F	B	Cecal tumor	Cancer in VA	M	Appendectomy
3	Sakaguchi ⁶⁾	1995	64 F	E	Cecal tumor	Muc	MP	Ileocecal resection
4	Hayashi ⁷⁾	1995	69 M	B	Cecal cancer	Tub1	M	Rt. Hemicolectomy
5	Yogi ⁸⁾	1998	69 F	B	Appendiceal tumor	Cancer in TVA	M	Partial resection of cecum
6	Saito ⁹⁾	1999	73 F	E	Cecal cancer	Cancer in A	SM	Ileocecal resection
7	Ohno ¹⁰⁾	2000	67 M	B	Cecal cancer	Cancer in TVA	M	Rt. Hemicolectomy
8	Ikuta ¹¹⁾	2001	74 F	E	Cecal cancer	Tub1	MP	Ileocecal resection
9	Fujii ¹²⁾	2003	84 F	E	Appendiceal tumor	Cancer in TVA	M	Ileocecal resection
10	Takahashi ¹³⁾	2003	49 M	E	Appendiceal tumor	Cancer in TA	M	Ileocecal resection
11	Egami ¹⁴⁾	2003	81 F	E	Cecal cancer	Tub1	SS	Ileocecal resection
12	Iwakawa ¹⁵⁾	2005	79 F	E	Cecal cancer	Muc	SE	Ileocecal resection
13	Our case		96 F	E	Cecal tumor	Cancer in TVA	M	Ileocecal resection

A : adenoma, TA : tubular adenoma, VA : villous adenoma, TVA : tubulovillous adenoma

の重積を伴わない原発性と、これを伴う続発性にわけ、さらに原発性を5型に分類している。すなわち、A) 虫垂先端のみの重積、B) 虫垂根部のみの重積、C) 虫垂中部での重積、D) 逆行性で中部での重積、E) 盲腸内に完全翻転する型の5型である。虫垂癌による虫垂重積例ではE型が9例と最も多く、残りはB型であった。自験例もE型を呈していた。Fraser¹⁷⁾によれば自験例のようなE型の頻度は10%であった。

一方、原発性虫垂癌も比較的な疾患であり、本邦では川上ら¹⁾によると、大腸癌手術症例の0.5~1.4%であり、また虫垂切除例の0.02~0.84%と報告されている。早期には症状に乏しく、診断が困難で発見時にはそのほとんどは進行癌である。急性虫垂炎、回盲部腫瘍、盲腸周囲膿瘍などの診断で開腹されることが多く、術前に虫垂癌と診断されるものは極めて少ない。虫垂重積症を来した虫垂癌の13例においても虫垂腫瘍と術前診断されたのはわずか3例のみであり、ほとんどが盲腸の腫瘍または癌と診断されていた。自験例も盲腸腫瘍と術前診断していた。注腸造影検査が虫垂重積の診断には重要で、B型での典型的な所見は、本来虫垂が造影されるべき部位に“coiled spring sign”と称される陰影欠損を認め、かつ虫垂が造影されないこととされている¹⁸⁾。また、E型では盲腸内に“finger-like”と称される陰影欠損を認めるとされている¹⁹⁾。さらに、CT所見では盲腸部

に境界の鮮明な円筒状の腫瘍としてみられる²⁰⁾。自験例において術前の検査所見について検討してみると、これらの所見と同様であることがわかる。すなわち、大腸内視鏡検査にて盲腸腫瘍を認める場合には、虫垂重積症を来した虫垂癌も鑑別として考え、CTや注腸造影所見などとあわせて判断すれば、診断は可能であると思われる。

虫垂は組織的に筋層が薄い癌が容易に漿膜へ浸潤しやすく、またリンパ組織に富み、リンパ節転移を来しやすいとされている²¹⁾にもかかわらず、虫垂重積症を来した虫垂癌症例は早期癌や腺腫内癌が大部分を占めていることから、早い時期の方が翻転しやすいと考えられる。

治療に関しては、虫垂癌は診断が困難で発見時にはそのほとんどは進行癌であることを考えると、虫垂癌と診断されれば、D2以上のリンパ節郭清を含む右結腸切除術または回盲部切除術が施行されるべきであろう。しかし、虫垂重積症を来した虫垂癌の報告例は早期癌や腺腫内癌が大部分を占めていることから、リンパ節転移を認めなければ、縮小手術も適応になると考えられる。自験例は96歳と高齢であり、リンパ節転移を認めなかったことより、回盲部切除術(D1)を施行した。

本論文の要旨は第61回日本消化器外科学会定期学術総会(2006年7月、横浜市)において発表した。

稿を終えるにあたり、病理組織学診断にご指導を頂きました富山市医師会病理部の高柳尹立先生に深謝いたします。

す.

文 献

- 1) 川上和彦, 馬場正三, 萩原裕之ほか: 絨毛状発育を内視鏡的に認めた虫垂絨毛癌の1例. 胃と腸 **25**: 1227—1230, 1990
- 2) Collins DC: 71,000 human appendix specimens. A final report, summarizing forty years' study. *Am J Proctol* **14**: 265—281, 1963
- 3) Itoh J, Soeno T, Koizumi R: Intussusception of the appendix with a calcified fecalith. *Jpn J Surg* **17**: 195—198, 1987
- 4) 岡田和也, 岩松正義, 西野豊彦ほか: 盲腸内腔へ発育した若年者虫垂癌の1例. 日消外会誌 **23**: 2837—2841, 1990
- 5) Miyahara M, Saito T, Etoh K et al: Appendiceal intussusception due to an appendiceal malignant polyp—an association in a patient with Peutz-Jeghers syndrome: report of a case. *Surg Today* **25**: 834—837, 1995
- 6) 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
- 7) 林 達弘, 板橋道朗, 宮川隆平ほか: 盲腸内に重積し特異な形態を呈した虫垂癌の1例. 手術 **49**: 1441—1445, 1995
- 8) 与儀喜邦, 菊池二郎, 瀬戸口敏明ほか: 虫垂重積症の1例. 日本大腸肛門病会誌 **51**: 386—393, 1998
- 9) 斎藤隆道, 浮草 実, 亥埜恵一ほか: 早期虫垂癌が要因となった完全型虫垂重積症の1例. 臨外 **54**: 815—818, 1999
- 10) Ohno M, Nakamura T, Hori H et al: Appendiceal intussusception induced by tubulovillous adenoma with carcinoma in situ: report of a case. *Surg Today* **30**: 441—444, 2000
- 11) 生田義明, 杉原重哲, 小林広典ほか: 完全型虫垂重積症を呈した虫垂癌の1例. 日消外会誌 **34**: 41—44, 2001
- 12) 藤井 収, 坂口俊也, 杉村和朗ほか: 早期虫垂癌による完全型虫垂重積症の1例. 臨放 **48**: 949—952, 2003
- 13) Takahashi M, Sawada T, Fukuda T et al: Complete appendiceal intussusception induced by primary appendiceal adenocarcinoma in tubular adenoma: a case report. *Jpn J Clin Oncol* **33**: 413—415, 2003
- 14) 江上拓哉, 中村賢二, 初井真二ほか: 盲腸内に重積反転した虫垂癌の1例. 日消外会誌 **36**: 1332—1335, 2003
- 15) 岩川和秀, 田中 仁, 杉山圭三ほか: 限局性腹膜播種を伴った虫垂癌による完全型虫垂重積症の1例. *Gastroenterol Endosc* **47**: 2664—2669, 2005
- 16) Atkinson GO, Gay BB Jr., Naffis D: Intussusception of the appendix in children. *Am J Roentgenol* **126**: 1164—1168, 1976
- 17) Fraser K: Intussusception of the appendix. *Br J Surg* **31**: 23—33, 1943
- 18) Levine MS, Trenkner SW, Herlinger H et al: Coiled-spring sign of appendiceal intussusception. *Radiology* **155**: 41—44, 1985
- 19) Bachman AL, Clemett AR: Roentgen aspects of primary appendiceal intussusceptions. *Radiology* **101**: 531—538, 1971
- 20) Styles RA, Larsen CR: CT appearance of adult intussusception. *J Comput Assist Tomogr* **7**: 331—333, 1983
- 21) 村上義昭, 友安敏博, 津村裕昭ほか: 大腸内視鏡検査にて術前に診断しえた早期原発性虫垂癌の1例. —最近の本邦報告100例の検討. 日臨外医会誌 **47**: 1316—1321, 1986

A Case of Complete Intussusception Induced by Cancer of the Appendix

Yoshinobu Yokoyama, Hideo Okami, Tetsuji Minamimura* and Kazuhiro Tsukada*

Department of Surgery, Toyama Teishin Hospital

Second Department of Surgery, Toyama University*

We report a case of complete intussusception induced by appendiceal cancer with a review of the literature. A 96-year-old woman seen for melena was found in colonofiberscopy and barium enema to have a cecal tumor. Abdominal computed tomography showed a cecal mass with a target sign. Based on a preoperative diagnosis of intussusception with a cecal tumor, we conducted ileocelectomy. Appendiceal intussusception was found intraoperatively and in the postoperative specimen. Microscopic examination showed well-differentiated adenocarcinoma in tubulovillous adenoma localized to the appendix mucosa. Diagnosis of intussusception with carcinoma of the appendix is often difficult because appendiceal carcinoma is rare. Although this disease can be diagnosed by radiographic imaging, colonoscopy, and computed tomography, it should always be considered in diagnosing diseases of the cecum. Minimal surgical intervention should be performed in the event of failure of recognition of lymph node metastasis, because early cancer and cancer in adenoma are reported to be the most probable reasons for appendiceal intussusceptions caused by appendiceal cancer.

Key words : appendiceal carcinoma, appendiceal intussusception

[Jpn J Gastroenterol Surg 43 : 667—672, 2010]

Reprint requests : Yoshinobu Yokoyama Department of Surgery, Toyama Teishin Hospital
2-2-29 Kashima-cho, Toyama, 930-8798 JAPAN

Accepted : September 16, 2009