症例報告

早期虫垂癌による不完全型虫垂重積症の1例

明石 諭 山田 行重 杉森 志穂

伊藤 眞廣 島田 啓司* 吉川 高志

国保中央病院外科

奈良県立医科大学病理病態学*

症例は76歳の男性で、胃癌術後外来通院中に施行した腹部CTで盲腸内にリング状に造影される腫瘤を認めた。大腸内視鏡検査では盲腸内に突出する腫瘍性病変を認め、中心部陥凹しており、虫垂根部の腫瘍が盲腸内に翻転したものと思われた。生検にて高度異型腺腫を認め、虫垂腫瘍(腺腫もしくは癌)による虫垂重積症と診断した。開腹時、虫垂根部が盲腸内に陥入している不完全型虫垂重積症を認め、回盲部切除術およびリンパ節郭清を施行した。病理組織検査では虫垂根部を中心に絨毛腺管腺腫を認め、一部に壁深達度Mの高分化腺癌が併存していた。本邦で虫垂腺腫・癌を誘因とする虫垂重積症は検索しえたかぎり本例を含め26例であった。癌は17例で、そのうち10例(58.8%)が深達度M・SMであり、縮小手術の可能性が示唆されるが、なかには腹膜播種やリンパ節転移例もあり、その適応は慎重に行う必要があると思われる。

はじめに

虫垂重積症はCollins¹⁾の報告によると71,000例の虫垂切除および剖検例のうち、7例(0.01%)とまれな疾患である。重積は種々の疾患によって引き起こされるが、虫垂癌がその原因となることは比較的まれである。

今回、我々は早期虫垂癌による不完全型虫垂重積症の1切除例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：76歳，男性

主訴：特になし

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：70歳時，早期胃癌。

現病歴：70歳時に当院で胃癌に対して胃全摘術を施行し、以後定期的に外来通院中であった。2009年7月末に施行した腹部造影CTで盲腸内にリング状に濃染される腫瘤を認めたため、精査目的に大腸内視鏡検査を行った。

現症：身長164cm，体重47kg。腹部正中に胃癌手術時の手術創を認める。圧痛や腹部腫瘤などは認めなかった。

血液検査所見：血液検査に異常を認めず、腫瘍マーカーもCEA 2.6ng/ml，CA19-9 15.2U/mlと正常範囲内であった。

腹部造影CT所見：盲腸内にリング状に濃染される腫瘤を認めた (Fig. 1a)。

Fig. 1 a: Abdominal CT showed a ring-enhanced tumor in the cecum (arrow). b: Colonoscopy demonstrated the protruding adenomatous lesion in the cecum. As the center of the lesion was concave, biopsy forceps had to be cannulated.

Fig. 2 a: The resected specimen showed that a part of appendix with mesoappendix was intussuscepted into the cecum (arrow). b: A biopsy probe was cannulated into the concave lesion. A; appendix, B; Bauhin's valve, C; cecum.

大腸内視鏡検査所見：盲腸内腔に突出する腫瘍性病変を認め、この中心部には陥凹があり、生検鉗子が挿入可能であることから、虫垂根部の腫瘍が盲腸内に翻転した虫垂腫瘍であると思われた (Fig. 1b)。この部位の生検から高度異型を伴う腺腫が認められ、虫垂癌の存在も疑われたため、虫垂腫瘍による虫垂重積症の診断で手術を行った。

手術所見：虫垂の一部が虫垂間膜を伴って盲腸に陥入しており、虫垂重積となっていた。術式は回盲部切除術およびD3リンパ節郭清を行った。

摘出標本肉眼像：虫垂の一部が盲腸内に陥入しており、標本を切開すると盲腸内に突出する腫瘍を認め、内視鏡検査時と同様に中心の陥凹部に消息子の挿入が可能であった (Fig. 2a, b)。

病理組織学的検査所見：ホルマリン固定後に虫垂の長軸方向に切開すると虫垂根部が盲腸内に重積していた (Fig. 3a~c)。虫垂根部を中心に絨毛腺管腺腫を認め、一部に高分化腺癌を伴っていた (Fig. 4)。深達度はMで、脈管侵襲やリンパ節転移を認めず、fStage 0 (M, N0, H0, M0, P0) であった。

術後経過：合併症なく経過し、術後14病日目に退院した。現在も外来通院中で、再発は認めていない。

考 察

虫垂重積症はまれな疾患であり、Collinsは虫垂切除および剖検71,000例のうち、7例(0.01%)にしかみられないと報告している¹⁾。その発生機序として解剖学的には胎児型盲腸、近位虫垂内腔が広いこと、

Fig. 3 a: The base of appendix was inverted into the cecum. b: Transection view of the tumor. c: Schematic illustration of B (gray; appendix, black; appendiceal lumen, ★; the lesion of the partially intussuscepted appendix). A; appendix, B; Bauhin's valve, C; cecum.

Fig. 4 Histopathological examination demonstrated well differentiated adenocarcinoma in a tubulovillous adenoma at the base of appendix. A; appendix, C; cecum.

虫垂間膜の菲薄化などの要因が、病理生理学的には虫垂内腔の糞石や異物、炎症、異所性子宮内膜症、腺腫・癌などの腫瘍が関与しているといわれている²⁾³⁾。Chaarら⁴⁾の英文報告191例の検討では、発症は小児の45例(24%)に比べ、成人の方が144例(76%)と多く、その原因としては子宮内膜症が40例(33%)と最多であり、次いで炎症、粘液嚢胞で、ともに24例(19%)で、以下腺腫14例(11%)、カルチノイド9例(7%)、腺癌7例(6%)と続き、癌による虫垂重積症の頻度は低かった。

そこで本邦における虫垂癌およびその発生母地となりうる虫垂腺腫による虫垂重積症を検索した。1983年から2011年7月まで医学中央雑誌で「虫垂腫瘍」「虫垂重積」をキーワードに検索(会議録を除く)したものに、それらの引用文献を合わせると虫垂癌16例、虫垂腺腫9例の報告例があり、これに自験例の虫垂癌を加えた計26例で検討した(Table 1)^{5)~29)}。年齢は17歳から96歳(平均62.3歳)で、男性7例、女性19例であった。

症状はChaarら⁴⁾の報告では78%に腹痛を認め、以下嘔吐26%、下血23%と続く。無症状例は検査での腫瘍指摘および貧血があてはまると思われるが、これがそれぞれ18%と3%であった。本検討では疼

Table 1 The reported cases of appendiceal intussusception by appendiceal carcinoma and adenoma in Japan

Case	Author	Year	Age/ Sex	Symptom	Preoperative diagnosis	Operation	Type	Location of the tumor	Depth	Metastasis
Carcinoma										
1	Furutani ⁵⁾	1989	76/F	diarrhea abd.pain	cecal tumor	ICR	B	entire	M, M	none
2	Okada ⁶⁾	1990	17/F	abd.pain	cecal cancer	RH	E	distal	SS	none
3	Tomita ⁷⁾	1991	60/F	abd.pain	acute appendicitis	A→RH	B	proximal	MP	lymph node
4	Hayashi ⁸⁾	1995	69/M	none	cecal cancer	RH	B	proximal	M	none
5	Miyahara ⁹⁾	1995	40/F	none	cecal polyp	A	B	distal	M	none
6	Sakaguchi ¹⁰⁾	1995	64/F	abd.pain	cecal cancer	ICR	E	distal and proximal	M, MP	none
7	Yogi ¹¹⁾	1998	69/F	abd.pain	appendiceal tumor	A	B	distal	M	none
8	Saito ¹²⁾	1999	73/F	back pain	cecal cancer	LAICR	E	entire	SM	none
9	Ohno ¹³⁾	2000	67/M	abd. pain	cecal cancer	RH	B	proximal	M	none
10	Ikuta ¹⁴⁾	2001	74/F	none	cecal cancer	LAICR	E	entire	MP	none
11	Egami ¹⁵⁾	2003	81/F	none	cecal cancer	ICR	E	entire	SS	lymph node
12	Fujii ¹⁶⁾	2003	84/F	abd. pain	intussusception by appendi- ceal tumor	ICR	E	entire	M	none
13	Takahashi ¹⁷⁾	2003	49/M	melena	intussusception by appendi- ceal cancer	ICR	E	center	M	none
14	Iwakawa ¹⁸⁾	2005	79/F	none	cecal cancer	ICR	E	distal	SE	peritoneum
15	Tsuchida ¹⁹⁾	2009	58/F	abd. pain	cecal or appendiceal cancer	RH	B	proximal	MP	none
16	Yokoyama ²⁰⁾	2010	96/F	melena	intussusception by cecal tu- mor	ICR	E	entire	M	none
17	Our case		76/M	none	intussusception by appendi- ceal tumor	ICR	B	proximal	M	none
Adenoma										
18	Dohman ²¹⁾	1989	82/F	abd. pain	acute appendicitis	RH	E	entire	—	—
19	Sadahiro ²²⁾	1991	35/F	abd. pain diarrhea	cecal adenoma	RH	E	distal	—	—
20	Kamiya ²³⁾	1996	72/M	discomfort at defecation	appendiceal adenoma	ICR	B	proximal	—	—
21	Munemoto ²⁴⁾	2000	31/M	abd. pain melena	intussusception by cecal tu- mor	LAICR	E	center	—	—
22	Shiroko ²⁵⁾	2000	55/M	none	cecal cancer	ICR	B	proximal	—	—
23	Muguruma ²⁶⁾	2002	67/F	none	cecal cancer	RH	E	entire	—	—
24	Matsuki ²⁷⁾	2004	70/F	appetite loss	intussusception by ileocecal tumor	ICR	B	proximal	—	—
25	Maeda ²⁸⁾	2005	48/F	abd. pain	intussusception by appendi- ceal adenoma	ICR	B	proximal	—	—
26	Godai ²⁹⁾	2008	27/F	abd. pain	intussusception	LAICR	B	center	—	—

abd.: abdominal, ICR: ileocecal resection, RH: right hemicolectomy, A: appendectomy, LAICR: laparoscopy assisted il-
eocecal resection

痛（腹痛以外も含む）が14例（53.8%）で最多であり，自験例と同じ無症状例は次に多く8例（30.7%）であった。

症状と病悩期間も合わせて以下の5つに分類されることもある^{2),30),31)}。①短時間の経過で急性虫垂炎様の症状を発症し，虫垂炎の診断で手術が行われるもの。②数日間にわたる腹痛・嘔吐を認め，腸重積の症状を呈するもの。これは虫垂重積が原因となって二次性の結腸結腸重積や回腸結腸重積を伴っていることもあり，腸重積の術前診断がなされる。③数か月から数年間の長期間にわたって反復する右下腹部

の間欠痛を呈するもので、二次性の腸重積が発症することで症状が出現するものの、自然に整復してしまうので症状が消失するもの。④無症状のもの。⑤下血を来すものである。

このように多彩な症状を呈するので、術前診断は難しく、症状出現時の画像検査も合わせて診断する必要がある。画像検査の特徴的な所見として、注腸検査における finger-like intraluminal filling defect³²⁾, coiled-spring sign³³⁾や大腸内視鏡検査における foreskin and glans³⁴⁾, volcano sign²⁷⁾があり、いずれも反転した虫垂の形態をとらえている。腹部CTでは通常の腸重積と同様に multiple concentric sign を呈することがある。本検討で虫垂重積症の術前診断が可能だったのは自験例を含む4例だけであり、うち3例が内視鏡検査が診断に寄与していた。

虫垂重積症の分類は本邦では Atkinson の分類³⁰⁾としてよく用いられているが、Atkinson は Forshall²⁾の論文から分類を引用しているため、本論文では Forshall の分類とする (Fig. 5)。A-D 型までは虫垂が一部重積するものであるが、E 型は虫垂が完全に翻転するものである。本検討において、自験例と同じ B 型は13例、E 型も13例であり、他の病型は認めなかった。B 型では虫垂の近位に病変を認めるものが13例中9例を占め、E 型では虫垂全体に病変が存在するものが7例であり、病型の違いは病変の存在部位がある程度関与するものと思われた。ちなみに他の病型を呈するものは横田ら³⁵⁾の10年間の虫垂重積症の集計では A 型が2例とともに特発性、C 型は粘液嚢胞腺腫の1例で、D 型は認めないとのことであった。

大腸癌による腸重積の好発部位は S 状結腸・盲腸であり³⁶⁾、このうち深達度 MP 以上の進行癌の比率が S 状結腸癌では 74.3%³⁷⁾、盲腸癌では 84.3%³⁸⁾と、かなり高いのに比べると、虫垂癌は17例中10例が深達度 M・SM であり、早期癌の頻度が比較的高いといえる。虫垂重積がなぜ早期癌で診断されることが多いのかを考えてみると、おそらく重積は虫垂や大腸の他の部位であっても早期癌の時から生じている

が、大腸の他の部位では管腔が広いいため症状を発現することなく自然に整復され、腫瘍の増大に伴い、進行癌になってから重積が生じて、整復することなく症状が発現する。一方、虫垂は管腔が狭いので腺腫あるいは早期癌の状態でも重積が生じて整復されずに発見されるので、早期癌の頻度が高いものと思われる。また虫垂癌の重積が進行癌の状態で診断されるものは、進行癌になってから虫垂重積を来すのではなく、腺腫あるいは早期癌が重積となった状態のままで経過し、腫瘍が深部へ発育してから発見されたものと思われる。

虫垂重積症の治療はその原因疾患によって考慮する必要がある。特発性や子宮内膜症が原因の場合は可能なら重積解除術や虫垂切除術でよく、腺腫でも虫垂切除術でよいと思われる。しかし、術前には虫垂重積症自体の診断が困難であるし、術中でも重積により腫瘍が形成されているので良悪性の診断が困難である。また癌であることが術前に診断されていたとしても、その深達度診断は困難で、これが術式選択に難渋する点である。本検討における虫垂癌の重積症に対する手術術式は回盲部切除術が10例、右半結腸切除術が5例に行われており、虫垂切除術は2例のみであった。自験例では虫垂根部に癌を疑う病変があり、深達度が不明であるため回盲部切除術を行った。早期癌の頻度が高いので、これらは虫垂切除術やD2程度の郭清などの縮小手術の適応となりうるが、なかには腹膜播種を伴うSE癌が1例、リンパ節転移を認めたものが2例あり、その適応については慎重に行う必要があると思われる。

文献

- Collins DC. 71,000 human appendix specimens. A final report, summarizing forty years' study. *Am J Proctol*. 1963 Dec; 14(6):265-81.
- Forshall I. Intussusception of the vermiform appendix with a report of seven cases in children. *Br J Surg*. 1953 Jan;40 (162):305-12.
- Fink VH, Santos AL, Goldberg SL. Intussusception of the appendix-case reports and reviews of the literature. *Am J Gastroenterol*. 1964 Oct;42:431-41.
- Chaar CI, Wexelman B, Zuckerman K, Longo W. Intussusception of appendix: comprehensive review of the literature. *Am J Surg*. 2009 Jul;198(1):122-8.
- 古谷保博, 中尾量保, 藤田修弘, 前田克昭, 濱路政靖, 西村 正, ほか. 虫垂内腔に広く進展した腺腫に腺腫内癌が多発した一例. *大阪警察病院医学雑誌*. 1989;13:57-62.
- 岡田和也, 岩松正義, 西野豊彦, 筑波貴与根, 清水 力, 松尾俊和. 盲腸内腔へ発育した若年者虫垂癌の1例. *日本消化器外科学会雑誌*. 1990;23(12):2837-41.
- 富田康弘, 日下部輝夫, 森 秀樹, 前田隆志, 津島秀史. 癌化を伴った虫垂 villous tumor の1例. *日本臨床外科医学会雑誌*. 1991;52(6):1308-12.
- 林 達弘, 板橋道朗, 宮川隆平, 荒武寿樹, 稲田直行, 進藤廣成, 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*. 1995;49(9):1441-5.
- Miyahara T, Saito T, Etoh K, Shimoda K, Kitano S, Kobayashi M, 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*. 1995 Sep;25(9):834-7.
- Sakaguchi N, Ito M, Sano K, Baba T, Koyama M, Hotchi M. Intussusception of the appendix: a report of three cases with different clinical and pathologic features. *Pathol Int*. 1995 Oct;45(10):757-61.
- 与儀喜邦, 菊池二郎, 瀬戸口敏明, 土持昭男. 虫垂重積症の1例. *日本大腸肛門病学会雑誌*. 1998;51(6):386-93.
- 斎藤隆道, 浮草 実, 亥埜恵一, 井ノ本琢也, 鍛 利幸, 東山 洋, 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. *臨床外科*. 1999;54(6):815-8.
- Ohno M, Nakamura T, Hori H, Tabuchi Y, Kuroda Y. Appendiceal intussusception induced by tubulovillous adenoma with carcinoma in situ: report of a case. *Surg Today*. 2000 May;30(5):441-4.
- 生田義明, 杉原重哲, 小林広典, 金子隆幸, 江上哲弘, 堀地義広. 完全型虫垂重積症を呈した虫垂癌の1例. *日本消化器外科学会雑誌*. 2001;34(1):41-4.
- 江上拓哉, 中村賢二, 舩井真二, 田畑正久. 盲腸内に重積反転した虫垂癌の1例. *日本消化器外科学会雑誌*. 2003;36(9):1332-5.
- 藤井 收, 坂口俊也, 杉村和朗, 堀 宏成, 藤田恒憲, 足立雅尚, ほか. 早期虫垂癌による完全型虫垂重積症の1例. *臨床放射線*. 2003;48(8):949-52.
- Takahashi M, Sawada T, Fukuda T, Furugori T, Kuwano H. Complete appendiceal intussusception induced by primary appendiceal adenocarcinoma in tubular adenoma: a case report. *Jpn J Clin Oncol*. 2003 Aug;33(8):413-5.
- 岩川和秀, 田中 仁, 杉山圭三, 市川幹郎, 梶原伸介, 栗原憲二. 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. *Gastroenterological Endoscopy*. 2005;47(12):2664-9.
- 土田研司, 川合 孝, 岡本 哲, 田幡克也, 中舘 功. 虫垂癌による不完全型虫垂重積症の1例. *Gastroenterological Endoscopy*. 2009;51(5):1309-16.
- 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. *日本消化器外科学会雑誌*.

- 2010;43(6):667-72.
- 21) 道満尚文, 黒瀬通弘, 波多野浩明, 中島 明, 大山正史, 徳田直彦, ほか. 腸重積を合併した虫垂腺腫の1例. 津山中央病院医学雑誌. 1989;3(1):93-6.
  - 22) Sadahiro S, Ohmura T, Yamada Y, Saito T, Akatsuka S. A case of cecocolic intussusception with complete invagination and intussusception of the appendix with villous adenoma. *Dis Colon Rectum*. 1991 Jan;34(1):85-8.
  - 23) 神谷 諭, 千木良晴ひこ, 加藤岳人, 柴田佳久, 尾上重巳, 空野泰司, ほか. 重積を伴った虫垂絨毛腺腫の1例. 日本消化器外科学会雑誌. 1996;29(12):2314-8.
  - 24) 宗本義則, 浅田康行, 辰沢敦司, 小杉郁子, 亀水 忠, 阿部仁郎, ほか. 虫垂腫瘍による完全型虫垂重積症の1例. 胃と腸. 2000;35(1):6-9.
  - 25) 白子隆志, 横尾直樹, 北角泰人, 東 久弥, 福井貴巳, 田中千弘, ほか. 盲腸内重積を伴った虫垂腺管腺腫の1例. 日本消化器外科学会雑誌. 2000;33(6):745-9.
  - 26) 六車恵子, 古賀 光, 尾形佳子, 有友雄一, 鎌田英紀, 栗井一哉, ほか. 完全型虫垂重積症の原因となった虫垂管状絨毛腺腫の1例. 香川県内科医会誌. 2002;38:55-9.
  - 27) 松木美知子, 友廣敦文, 牛山貴文, 石村 健, 井上秀幸, 杵川文彦, ほか. 盲腸結腸型腸重積を併発した虫垂腺腫による虫垂重積症の1例. *Gastroenterological Endoscopy*. 2004;46(12):2567-74.
  - 28) 前多 力, 渡部智雄, 石引佳郎, 富木裕一, 坂本一博, 鎌野俊紀. 虫垂重積を先進部とする結腸重積をきたした虫垂原発 villous tumor の1例. 日本臨床外科学会雑誌. 2005;66(5):1094-8.
  - 29) 五代天偉, 原田 浩, 熊切 寛, 深野史靖, 田村 功, 鈴木紳一郎. 腹腔鏡補助下で切除した虫垂腺腫による虫垂重積症の1例. 横浜医学. 2008;59(1):69-74.
  - 30) Atkinson GO, Gay BB Jr, Naffis D. Intussusception of the appendix in children. *AJR Am J Roentgenol*. 1976 Jun;126(6):1164-8.
  - 31) Brewer RJ, Wangenstein SL. Appendiceal intussusception: an unusual cause of painless rectal bleeding. *Am Surg*. 1974 May;40(5):319-20.
  - 32) Bachman AL, Clemett AR. Roentgen aspects of primary appendiceal intussusception. *Radiology*. 1971 Dec;101(3):531-8.
  - 33) Levine MS, Trenkner SW, Herlinger H, Mishkin JD, Reynolds JC. Coiled-spring sign of appendiceal intussusception. *Radiology*. 1985 Apr;155(1):41-4.
  - 34) Chijiwa Y, Kabemura T, Toyota T, Tanaka A, Misawa T. Endoscopic appearance of the intussuscepted appendix and accurate preoperative diagnosis. *Am J Gastroenterol*. 1988 Nov;83(11):1301-3.
  - 35) 横田 満, 朴 泰範, 吉田泰夫, 伊藤 雅, 小笠原敬三. 特発性虫垂重積症の1例. 日本臨床外科学会雑誌. 2009;70(1):124-9.
  - 36) 坂田好史, 佐々木政一, 森 一成, 白井康嗣. S状結腸癌を先進部とする成人腸重積症の1例. 日本臨床外科学会雑誌. 2003;64(5):1179-83.
  - 37) 大澤一郎, 勝峰康夫, 湯浅浩行, 野田直哉, 上原伸一, 赤坂義和, ほか. 経肛門のイレウスチューブにて整復後に切除しえた腸重積合併S状結腸癌の1例. 日本消化器外科学会雑誌. 2009;42(1):105-11.
  - 38) 志田 大, 井上 暁, 真栄城剛, 宮本幸雄, 梅北信孝. 盲腸癌による成人腸重積症の6例. 日本臨床外科学会雑誌. 2010;71(3):659-63.

CASE REPORT

A Case of Partial Appendiceal Intussusception Induced by Appendiceal Carcinoma

Satoru Akashi, Yukishige Yamada, Shiho Sugimori,
Masahiro Ito, Keiji Shimada* and Takashi Yoshikawa

Department of Surgery, Kokuho Central Hospital

Department of Pathology, Nara Medical University*

During outpatient treatment for postsurgery of gastric cancer, a ring-enhanced tumor was detected in the cecum on abdominal CT of a 76-year-old man. Colonoscopy showed the protruding adenomatous lesion in the cecum and the center of lesion was concave. Endoscopic biopsy demonstrated tubular adenoma with severe atypia, and we diagnosed appendiceal intussusception caused by appendiceal tumor (adenoma or carcinoma). At laparotomy, the base of the appendix was partially inverted into the cecum, and ileocecal resection with lymph node dissection was performed. Histopathological examination revealed well differentiated adenocarcinoma in tubulovillous adenoma, which was limited to the mucosa. In Japan, reports (including the present case) of intussusception induced by appendiceal carcinoma and adenoma total 26 patients. Carcinoma was identified 17 cases, and 10 (58.8%) of which confined to mucosal or submucosal layer. These histopathological findings suggested the appropriateness of minimally invasive surgery. However the indications should be evaluated carefully, because some cases were advanced cases, with peritoneal dissemination or lymph node metastasis.

Key Words: appendiceal carcinoma, appendiceal tumor, appendiceal intussusception

(Jpn J Gastroenterol Surg. 2012;45(6):664-671)

Reprint requests: Satoru Akashi Department of Surgery, Kokuho Central Hospital
404-1 Miyako, Tawaramoto-cho, Shiki-gun, 636-0302 JAPAN

Accepted: December 21, 2011