症例報告

腸腰筋へ穿破した粘液球腫症（myxoglobulosis）を伴った虫垂粘液腺腫の1例

杉戸 伸好¹⁾ 村元 雅之¹⁾ 長谷川 毅¹⁾ 小森 徹也¹⁾
保里 恵一¹⁾ 松尾 洋一²⁾ 竹山 廣光²⁾

¹⁾愛知県厚生農業協同組合連合会知多厚生病院外科

²⁾名古屋市立大学消化器外科

患者は65歳の男性で、急性虫垂炎の診断で、近医にて抗生剤による保存的治療を受けたが、再燃したため受診した。腹部所見では、右下腹部に鶏卵大の弾性硬の腫瘤を触れ、右足挙上時の腰背部違和感を認めた。CTで右下腹部に内部不均一に造影効果のある腫瘤を認め、その背側の腸腰筋内部に3×4 cm大の低吸収域を認めた。腹部超音波検査では腸腰筋内は斑状で不均一であった。急性虫垂炎および腸腰筋への膿瘍の穿破の診断で手術を施行した。術前の診断どおり、虫垂先端が腸腰筋へ穿破していた。内部からは膿汁ではなく、直径2～4 mm大の真珠様の粒状物を認めた。虫垂切除後、粒状物を回収し、腸腰筋内部を洗浄、ドレーンを留置し手術を終えた。病理学的には中等度異型像を示したが、悪性像はなく、粘液球腫症（myxoglobulosis）を伴う虫垂原発粘液産生性腺腫と診断した。術後5年ほど経過しているが、特に再発は認めていない。

キーワード：myxoglobulosis, 虫垂粘液腺腫, low-grade appendiceal mucinous neoplasm

はじめに

粘液球腫症（myxoglobulosis）は、粘液嚢腫（mucocoele）の特殊型に分類され、発生頻度はその0.35～8%¹⁾²⁾といわれて非常にまれな疾患である。粘液物質でできた球状体の存在が特徴で、カエルの卵に似た塊を形成することから、fish-egg mucocoele, frog-egg mucocoele と呼ばれている。今回、我々は虫垂炎症状で発症し、腸腰筋へ穿破した myxoglobulosis を伴った虫垂粘液腺腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：65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、熱発のため近医を受診、急性虫垂炎の診断で抗生剤治療を受けた。その後症状は軽快していたが、約8日後再燃したため、翌日当科受診となった。なお、数か月前より右足の挙上動作時に右腰背部の違和感があった。

腹部理学所見：腹部は平坦、軟。右下腹部、McBurneyの圧痛点より、やや尾側に鶏卵大の弾性硬の腫瘤を触れた。反跳痛、筋性防御は認めなかった。

Fig. 1 Abdominal CT revealed a mass (arrows) with non-uniform contrast enhancement in the right lower quadrant and a 3×4-cm low-density area dorsally in the iliopsoas muscle.

Fig. 2 a, b: Abdominal US showed a patchy non-uniform area in the iliopsoas muscle.

入院時検査所見：血液検査では白血球 10,900/mm³, CRP 6.2 mg/dl と軽度の炎症所見を認めたが、腫瘍マーカーは CEA 7.1 ng/ml で軽度上昇, CA19-9 は 7.0 U/ml で正常範囲であった。

腹部造影 CT 所見：右下腹部に内部不均一に造影効果のある 5.0×2.0 cm 大の虫垂と思われる腫瘤を認め、その背側に連続する腸腰筋内部に 3.0×4.0 cm 大の低吸収域を認めた (Fig. 1)。

腹部超音波検査所見：虫垂内腔は直径約 1.4 cm、長さ約 5.5 cm で、虫垂に連なるようにその背側に 3.0×5.0 cm 大の low echoic lesion を認め、内部は斑状で不均一であった (Fig. 2a, b)。

以上より、急性虫垂炎および腸腰筋への膿瘍の穿破の術前診断で、手術を施行した。

手術所見：右下腹部傍腹直筋切開にて開腹した。腹水は認めなかった。腫大した虫垂を注意深く剥離すると、矢印で示すように虫垂先端と腸腰筋との間に穿通部分を認めた (Fig. 3a, b)。膿瘍腔を洗浄しようとしたところ、内部より直径 2~4 mm 大の真珠様の粒状物の流出を認めた。虫垂を切除した後、粒状物を回収し、腸腰筋内部をネラトンカテーテルを用い洗浄、ドレーンを留置し手術を終えた。

切除標本肉眼所見：腫大した虫垂の最大径は約 2 cm、内部に直径 2~4 mm、黄白色調で軟らかい真珠様の粒状物を認めた (Fig. 4b, c)。また、虫垂根部は閉塞しており、虫垂先端から約 2.5 cm に穿孔部分を認めた (Fig. 4a)。

Fig. 3 a, b: It showed a penetration portion between the appendix and the iliopsoas muscle (arrows).

Fig. 4 a: Macroscopic findings of globules and the resected specimen of the appendix. The maximum diameter of the swollen appendix admitted 2 cm. b, c: It showed 2- to 4-mm pearl-like globules, inside the appendix. Arrow shows the penetrating part.

虫垂の病理組織学的検査所見：粘液産生性細胞が腺管を形成し増殖する像を認めた。

虫垂先端部に異型な上皮を認めたが限局しており，根部には特に異常を認めなかった。異型上皮の核は偽重層を示すが極性は保たれており，病理学的には中等度異型で悪性像はなかった（Fig. 5a）。

また，穿孔部において上皮は認めず，粘液で覆われており，異型上皮は認めなかった。

粘液の病理組織学的検査所見：内容物は，2～4 mm 大，粘液が球状に固まったもので，中央部には壊死細胞，それを中心に粘液と好中球が層状にとりまいており，表層にはたくさんの好中球の浸潤を認めた（Fig. 5b）。Periodic acid-Schiff（以下，PAS と略記）および Alcian blue（以下，AB と略記）の粘液染色検

Fig. 5 a: Histopathology showed moderate atypia, but no evidence of malignancy (HE $\times 100$). b: The globules were formed from concentric, multiple layers consisting of mucin and cell debris (HE $\times 100$). c: Alcian blue positive staining of the globules; Strong staining was observed as it goes to the outer layer (Alcian blue $\times 400$).

査では、ABによく染まる層状の粘液を確認でき、内層から外層に行くに従って粘液の濃縮している像を認めた (Fig. 5c)。

以上より、myxoglobulosis を伴う虫垂原発粘液産生性腺腫と診断した。

術後5年ほど経過観察を行ったが、特に再発兆候は認めていない。

考 察

虫垂 myxoglobulosis は、1897 年に Latham により初めて剖検例として報告され³⁾、本邦では 1910 年の佐藤ら⁴⁾の報告が最初である。Myxoglobulosis の概念は、1914 年に Von Hansemann⁵⁾により提唱された。Myxoglobulosis とは、粘液嚢腫の特殊型に分類され、発生頻度はその 0.35~8%といわれている。直径 2~3 mm 大の粘液物質でできた球状体の存在が特徴で、カエルの卵に似た塊を形成することから、fish-egg mucocoele, frog-egg mucocoele と呼ばれている。虫垂内腔に粘液が貯留し嚢腫状に腫大した病態を mucocoele といい、組織学的に、① focal or diffuse mucosal hyperplasia ② mucinous cystadenoma ③ mucinous cystadenocarcinoma に分類され⁶⁾、その割合は①36.4% ②50.7% ③12.9%と報告されている⁷⁾。しかし、最近では、low-grade appendiceal mucinous neoplasm (以下、LAMN と略記) という、組織学的には良性、臨床的には悪性の性格を示す腫瘍概念が提唱されている。これは、2003 年に Misdraji ら⁸⁾により虫垂粘液産生腫瘍の分類に初めて用いた名称で、2010 年 WHO 分類では LAMN は mucinous adenocarcinoma とともに悪性腫瘍に分類されている。LAMN は旧規約上の粘液嚢胞腺腫の大部分と粘液嚢胞腺癌の一部に相当し、日本においては、大腸癌取扱い規約第 8 版にて低異型度虫垂粘液性腫瘍として新たに分類されたが、現在そ

の治療法に関する明確なガイドラインはない。

本症例の手術、診断は2007年7月であり、旧規約では mucinous cystadenoma であったが、新たに病理診断を行い新基準に照らし合わせると LAMN と考えられた。また、McDonald ら⁹⁾は、LAMN を2種類に分類している。Type I は粘液あるいは内皮細胞が虫垂内腔にとどまるもの、Type II は粘膜下層以深へ浸潤するもので、Type II は腹膜偽粘液腫へ移行するリスクが高いと述べている。本症例は Type II であった。

LAMN に関する文献は散見されるようになっているが¹⁰⁾¹¹⁾、本症例のように腸腰筋へ穿破を起こし、5年以上も長期に生存している報告は検索しえなかった。

本邦での myxoglobulosis の報告は能美ら¹²⁾が1910～1979年の49例を報告している。医学中央雑誌において、1980年から2014年12月までの期間で、「虫垂粘液嚢胞腺腫」と「myxoglobulosis」をキーワードに検索（会議録を除く）しえた報告から集計すると本邦での myxoglobulosis の報告は自験例を含め13例であった。今回、内容の確認できた myxoglobulosis 本邦報告例に自験例を加え、集計し、検討を行った (Table 1)^{13)～24)}。Myxoglobulosis は、能美ら¹²⁾の報告では平均年齢は45歳、性差があり圧倒的に男性に多い。自験例を含めた13例では平均年齢は58歳で性差や年齢の分布に偏りはなかった。

術前診断は、結腸癌に合併して発見された症例を除くと、急性虫垂炎が最も多く5例で、虫垂粘液瘤4例、盲腸粘膜下腫瘍3例、盲腸腫瘍1例であった。文献では術前診断で虫垂炎あるいは虫垂炎性腫瘍とされた症例が多いが、無症状で経過すること多いため、剖検例や他の開腹手術時に偶発的に発見されることも少なくない。

組織学的には mucosal hyperplasia 4例、mucinous cystadenoma 8例、mucinous cystadenocarcinoma 1例で、粘液球の性状は、乳白色や黄白色調で半透明といった記載が多く、大きさは最小が1mm、最大で15mmほどで、数は数個～数万個に及ぶものまでさまざまである。また、大腸癌症例を除き、術前に腫瘍マーカーの上昇している症例は自験例を含め4例で、粘液嚢胞腺腫と診断された症例では腫瘍マーカーは正常であった。腫瘍マーカーに関して、別府ら²⁵⁾はCEAは虫垂粘液嚢胞腺腫の80.0%に高値を示すが、粘液嚢胞腺腫の44.8%でも高値を示すことから、鑑別診断としての有用性は低いと述べている。

Myxoglobulosis の発生条件として多くの論文では、①虫垂根部の狭窄、②残存虫垂粘膜が粘液分泌能を有すること、③内容が無菌あるいは極めて菌力が弱いこと、④糞便、異物がないこと、以上四つの条件がいわれており、吉永²⁶⁾はそれを実験的に確認している。現在までに myxoglobulosis の発生機序についてはいろいろと議論されているが、前述の4条件は myxoglobulosis の前段階でしかなく、これに何らかの条件が加わって myxoglobulosis へ発展すると考えられている。多くの論文では粘液球の形成には、中心となる核が必要であり、それは虫垂の脱落上皮などで構成される壊死物質と粘液塊で虫垂の腺窩で形成されるといわれている。粘液球の構造をみると、自験例でも同様の核を認め、核は1個のものもあれば、複数のものも認めた。さらに、その核を中心に粘液や細胞成分などが層状に取り巻くように成長している様子が確認できた。このような粘液小球の形成には、粘液-脱落上皮塊が虫垂腺窩でまず形成され、それを核に虫垂内腔で粘液の外層皮膜を形成するとする意見があるが、本症例でもその可能性を強く示唆する所見を得ることができた。

また、粘液球の核ができるためには、虫垂に適度な炎症が引き起こされ、虫垂根部が閉塞を起こすことが必要である。柳²⁷⁾は、X線にて、蛇行運動、回転運動、絞扼形成運動の3種類の虫垂の運動について述べており、虫垂炎に罹患するとその運動が著しく障害されると述べている。粘液小球形成に可動性が重要であるとするならば、あまりに強い炎症は myxoglobulosis の形成に不利である。しかし、虫垂の動きが癒着などで制約されているにもかかわらず、myxoglobulosis を発症している例もあり、myxoglobulosis の形成には虫垂筋層の動きだけではなく、腸管の蠕動や、ほかの要因も関連していると推察される²⁾⁴⁾⁵⁾¹²⁾。

一方、粘液球を形成しない嚢胞の場合、粘液が閉塞虫垂内に貯留、内圧が上昇し、いずれ虫垂の粘膜や壁も萎縮し、菲薄化すると考えられており、内部の粘液はさらさらとした粘液ではなく濃縮しており、一

Table 1 Reported case of myxoglobulosis in Japan (1982–2014)											
No.	Author (Year)	Age (Sex)	Symptom	Preoperative diagnosis	Operative method	Pathological findings	Tumor marker		Size of appendix (cm)	Globule of mucus	
							CEA (U/ml)	CA19-9 (U/ml)		Size (cm)	Number
1	Sakai ⁽¹³⁾ (1982)	72 (M)	abdominal pain	acute appendicitis	appendectomy	Mucosal hyperplasia	unknown	unknown	4.5×1	3	40
2	Kaneno ⁽¹⁴⁾ (1983)	51 (F)	abdominal pain	acute appendicitis	appendectomy	Mucosal hyperplasia	unknown	unknown	5×1	3	4
3	Ono ⁽¹⁵⁾ (1985)	60 (F)	abdominal pain	submucosal tumor of cecum	ileocecal resection	Mucinous cystadenoma	1.3	unknown	10×5	1–3	numerous
4	Wada ⁽¹⁶⁾ (1987)	57 (M)	abdominal pain	cecal tumor	right hemicolectomy	Mucinous cystadenoma	13.3	unknown	10×4.5	2–3	numerous
5	Morotomi ⁽¹⁷⁾ (1989)	36 (—)	abdominal pain	submucosal tumor of cecum, appendiceal mucocele	cecectomy	Mucinous cystadenocarcinoma	1.2	normal	8.5×2.0	3–5	220
6	Toyoda ⁽¹⁸⁾ (1990)	46 (M)	abdominal pain	acute appendicitis	appendectomy	Mucinous cystadenoma	2.2	normal	7.5×1.5	2–3	496
7	Hata ⁽¹⁹⁾ (1990)	25 (M)	abdominal pain	acute appendicitis, peritonitis	appendectomy	Mucosal hyperplasia	1.2	normal	7×5×1	2	numerous
8	Yoshida ⁽²⁰⁾ (1996)	65 (F)	constipation	appendiceal mucocele	ileocecal resection	Mucinous cystadenoma	17.9	normal	12×4	1	numerous
9	Kishinaka ⁽²¹⁾ (1997)	68 (F)	abdominal pain	appendiceal mucocele	appendectomy	Mucinous cystadenoma	normal	137.7	9×3	7–15	2
10	Sasaki ⁽²²⁾ (1999)	71 (M)	none	submucosal tumor of cecum	ileocecal resection	Mucosal hyperplasia	normal	normal	unknown	5–10	numerous
11	Nakazima ⁽²³⁾ (2000)	77 (M)	constipation	ascending colon cancer	right hemicolectomy, partial rectectomy	Mucinous cystadenoma	18.7	2	10×3.5	–8	numerous
12	Tanaka ⁽²⁴⁾ (2014)	65 (F)	none	appendiceal mucocele	ileocecal resection	Mucinous cystadenoma	2.8	6	7×2	1–3	hundreds
13	Our case	65 (M)	abdominal pain	acute appendicitis, periappendicular abscess	appendectomy	Mucinous cystadenoma	7.1	7	5.5×2	2–4	70

部ゲル化していることも多い。このような状況下では、内部環境や運動性から myxoglobulosis の形成はあまり期待できない。

現在までの説を総合すると、虫垂内でできた核が、虫垂を含む消化管の運動や筋肉の運動などで旋回し粘液球を成長させるといった説が有力で、結論は出ていないものの、myxoglobulosis を生じるには運動と内部環境の両方が重要と考えられている。

運動に関してはどの程度かは不明であるが、虫垂の緊満が強すぎず、ある程度の水分の行き来ができて、虫垂内部にある程度の内容物の動きがある状態が必要と考えられ、さらに必要な内部環境として、粘液の分泌能があり、粘液の濃縮・ゲル化が粘液小球の層構造を形成するのに必要であろうと思われた。

本症例では腸腰筋への穿破を起こし嚢腫が筋肉内で形成されたため虫垂内腔は減圧され、粘膜が良好に保たれたため、粘膜の萎縮がおこらずに虫垂腺腫を観察可能であった。このように腸腰筋への穿破というできごとにより偶然にも内部の良好な運動性を保てたことが myxoglobulosis の形成に寄与したのではないかと考えられた。

また、自然界には Liesegang Phenomenon と呼ばれるゾル状態とゲル状態の溶液の中で起こる化学反応が知られている²⁸⁾。推測の域を出ないが、粘液球の成長には、水溶液中でのムチン自体のゲル化（自己凝集能）や、他の化学物質との沈降反応なども関わっているのではないかと思われた。

虫垂粘液産生性腫瘍の治療は、基本的には手術による完全な切除である。粘液嚢胞腺腫に対しては、虫垂切除術もしくは盲腸部分切除術で十分とされており、粘液嚢胞腺癌に対してはリンパ節郭清を伴う回盲部切除以上の術式が必要であるとされている。

虫垂粘液嚢腫の穿孔や破裂症例においては腹膜偽粘液腫に準じて、診断と治療を兼ねた積極的な切除が望まれる。腹膜偽粘液腫の最適な治療は、腹膜切除を伴う完全減量切除と温熱化学療法との組み合わせとされている²⁹⁾。しかし、海外の専門施設の手術成績でも、手術時間が9～10時間、在院日数が3～4週間となっており、経験のあるチームにおいても、死亡率が2%、重篤な合併症の発生率が24%と報告されている³⁰⁾。同施設で完全減量切除を行った1,165例の5年生存率は85%、10年生存率は75%であった³⁰⁾。本邦では、矢野ら³¹⁾が38例の腹膜偽粘液腫症例に開腹術を行い、うち29例に完全減量切除を行い、手術時間の中央値は12時間で、全例に輸血を要し、Grade 3以上の合併症を11例（29%）に認めたものの、術死や在院死は認めなかったと報告している。

McDonald ら⁹⁾は、LAMN Type II は、年齢、performance status (PS) を考慮して腫瘍減量手術および温熱化学療法を施行すべきであると述べているが、腫瘍減量手術の内容は、大網および小網切除、胆嚢切除、腹膜切除、腫瘍の浸潤の程度により両側卵巣切除と子宮切除を追加するとしており、かなりの手術侵襲がある。実際に腫瘍減量手術および温熱化学療法が行われたのは50歳以下で、術式の採用には十分な検討が必要と考えられる。使用される抗がん剤に関しては、mitomycin C、5-FU、CDDP の報告が多いが、推奨される regimen は確立されていない。Paclitaxel や S-1、FOLFOX regimen などを使用した集学的治療での奏効例も散見され³²⁾³³⁾、分子標的薬なども含め、今後のさらなる検討が望まれる。

現実的には術前に臨床的に悪性を判断するのは、非常に困難で、新しい概念に対するエビデンスがまだ少なく、術後に LAMN であった場合の追加治療に難渋する機会が多くなるであろう。LAMN を含めた虫垂腫瘍の扱いに関して診断基準や治療ガイドラインの作成が望まれる。

利益相反：なし

文献

- 1) Felson B, Wiot JF. Some interesting right lower quadrant entities. Myxoglobulosis of the appendix, ileal prolapse,

- diverticulitis, lymphoma, endometriosis. Radiol Clin North Am. 1969;7(1):83-95.
- 2) Milliken G, Poindexter CA. Mucocoele of the appendix with globoid body formation. Am J Pathol. 1925;1(4):397-402.3.
 - 3) Probst JG, Lasser GN. Mucocoele of the appendix, with myxoglobulosis. Ann Surg. 1948;127(1):171-6.
 - 4) 佐藤 清. 多数ノ遊離小體ヲ形成セシ虫様突起炎ノ一例. 軍醫團雑誌. 1910;19:998-1004.
 - 5) 吉永 直胤, 石橋 秀教. 蟲様垂ミキソグロブローゼと粘液囊腫が併存せる稀有なる一例. 臨牀醫學. 1941;29:997-1002.
 - 6) Higa E, Rosai J, Pizzimbono CA, Wise L. Mucosal hyperplasia, mucinous cystadenoma, and mucinous cystadenocarcinoma of the appendix. A re-evaluation of appendiceal "mucocoele". Cancer. 1973;32(6):1525-41.
 - 7) 栗山 直久, 世古口 務, 山本 敏雄, 井戸 政佳, 三枝 庄太郎, 野田 雅俊. 虫垂粘液囊腫 11 例の検討. 日本臨床外科学会雑誌. 2003;64(3):673-7.
 - 8) Misdraji J, Yantiss RK, Graeme-Cook FM, Balis UJ, Young RH. Appendiceal mucinous neoplasms: a clinicopathologic analysis of 107 cases. Am J Surg Pathol. 2003;27(8):1089-103.
 - 9) McDonald JR, O'Dwyer ST, Rout S, Chakrabarty B, Sikand K, Fulford PE, et al. Classification of and cytoreductive surgery for low-grade appendiceal mucinous neoplasms. Br J Surg. 2012;99(7):987-92.
 - 10) 代市 拓也, 奥野 厚志, 若林 康夫, 越川 尚男. Low-grade appendiceal mucinous neoplasm の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌. 2014;75(3):707-10.
 - 11) 根岸 宏行, 四万村 司, 吉田 有徳, 大島 隆一, 國場 幸均, 相田 芳夫, ほか. Low-grade appendiceal mucinous neoplasm の 1 例. 日本大腸肛門病学会雑誌. 2015;68(5):312-7.
 - 12) 能美 伸八郎, 林 雅造. 虫垂 Myxoglobulosis の 1 例. 外科診療. 1979;21(9):1141-3.
 - 13) 坂井 直司, 榎本 良友, 渋谷 智顕, 西脇 勤, 江浪 博昭, 林 幸貴, ほか. 虫垂粘液囊腫の 2 治験例. 岐阜県厚生連医学雑誌. 1982;3:25-9.
 - 14) 金野 恒明, 横江 隆夫, 横山 和宣, 佐藤 和徳, 藤崎 裕, 浅見 博. 当院でみつけた虫垂異型性変化の 2 例. 群馬医学. 1983;39:98-101.
 - 15) 大野 義一郎, 青柳 晶彦, 中村 正樹, 並木 真生, 黒岩 俊一. 粘液球形成症を伴った虫垂粘液囊腫の 1 例. 胃と腸. 1985;20(2):213-7.
 - 16) 和田 浩一, 和田 孝次, 山口 幸二. 粘液球形成症を合併した虫垂粘液囊腫の 1 例. 外科. 1987;49(9):953-6.
 - 17) 諸富 嘉樹, 桑田 康典, 藤井 一郎, 柏原 瑩爾, 上田 祐造, 寺沢 明夫, ほか. 虫垂粘液球症を伴う虫垂粘液囊腫の 1 例. 日本消化器外科学会雑誌. 1989;22(12):2878-81.
 - 18) 豊田 暢彦, 村上 篤信, 山根 祥晃, 菅沢 章, 万木 英一, ほか. 虫垂粘液球症の 1 例. 外科診療. 1990;32(10):1457-60.
 - 19) 秦 怜志, 黒須 康彦, 岩田 光正, 森田 建. 穿孔性腹膜炎を合併した虫垂粘液球形成症の 1 例. 日本臨床外科医学会雑誌. 1990;51(12):2712-6.
 - 20) 吉田 正樹, 山田 昌宏, 藤本 正夫, 山口 満, 弓倉 宏志, 山瀬 裕彦. 腹部超音波と CT で特徴的所見を捉えた虫垂粘液球症の 1 例. 胃と腸. 1996;31(10):1273-8.
 - 21) 岸仲 正則, 粕井 眞二, 大里 隆, 田畑 正久. CA19-9 産生性虫垂原発粘液囊腫の 1 切除例. 日本消化器外科学会雑誌. 1997;30(11):2215-9.
 - 22) 佐々木 明徳, 桑島 一郎, 萱場 佳郎, 鶴飼 克明, 大方 俊樹, 中野 昇. 虫垂粘液球形成症の 1 例. Gastroenterological Endoscopy. 1999;41(1):54-9.
 - 23) 中島 芳道, 平山 克, 斎藤 研, 寺島 秀夫, 島田 友幸, 西山 宗一郎, ほか. 虫垂粘液囊腫 (虫垂 Myxoglobulosis) に上行結腸癌を併存した 1 例. 外科. 2000;62(8):977-80.
 - 24) 田中 俊道, 池田 篤, 甲斐田 武志, 迫 裕之, 奥澤 星二郎, 渡邊 昌彦. 腹腔鏡補助下に切除した虫垂粘液球症の 1 例. 日本外科系連合学会誌. 2014;39(5):940-7.
 - 25) 別府 理子, 日浦 昌道, 野河 孝充, 川上 洋介, 横山 隆, 千葉 丈, ほか. 右付属器炎と鑑別困難であった虫垂粘液囊腫の 1 例. 日本産科婦人科学会中国四国合同地方部会雑誌. 1988;46(2):232-5.
 - 26) 吉永 直胤. 蟲様垂ノ機能竝ニ其自律神經司配ニ關スル研究. 熊本医学会雑誌. 1941;17:985-1006.
 - 27) 柳 莊一. 急性腹部症・虫垂炎・外科臨床に於ける女性々器の疾患. 日本外科全書 第 21 卷. 東京:日本外科全書刊行会; 1954. p. 118-9.
 - 28) Tuur SM, Nelson AM, Gibson DW, Neafie RC, Johnson FB, Mostofi FK, et al. Liesegang rings in tissue. How to distinguish Liesegang rings from the giant kidney worm, diotrophoma renale. Am J Surg Pathol. 1987;11(8):598-605.
 - 29) Sugarbaker PH. New standard of care for appendiceal epithelial neoplasms and pseudomyxoma peritonei syndrome? Lancet Oncol. 2006;7(1):69-76.
 - 30) Chua TC, Moran BJ, Sugarbaker PH, Levine EA, Glehen O, Gilly FN, et al. Early- and long-term outcome data of patients with pseudomyxoma peritonei from appendiceal origin treated by a strategy of cytoreductive surgery and hyperthermic intraperitoneal chemotherapy. J Clin Oncol. 2012;30(20):2449-56.
 - 31) 矢野 秀朗, 合田 良政, 須田 竜一郎, 猪狩 亨. 【虫垂病変のすべて一非腫瘍から腫瘍まで】虫垂病変の臨床 腹膜偽粘液腫の診断および治療方針. 胃と腸. 2014;49(4):520-6.
 - 32) 藤谷 和正, 小川 久貴, 竹田 雅司, 平尾 素宏, 安井 昌義, 柏崎 正樹, ほか. 外科切除および Paclitaxel, S-1 を用いた集学的治療により 2 年後に CR が確認された腹膜偽粘液腫の 1 例. 癌と化学療法. 2008;35(3):523-7.
 - 33) 石橋 敬一郎, 傍島 潤, 岡田 典倫, 石塚 直樹, 横山 勝, 三橋 敏武, ほか. mFOLFOX6 療法を含む集学的治療が奏効した虫垂原発腹膜偽粘液腫の 1 例. 癌と化学療法. 2007;34(12):2047-9.

CASE REPORT

A Patient with Mucinous Cystadenoma of the Appendix and Myxoglobulosis with Perforation into the Iliopsoas Muscle

Nobuyoshi Sugito¹⁾, Masayuki Muramoto¹⁾, Takeshi Hasegawa¹⁾, Tetsuya Komori¹⁾,
Keiichi Hori¹⁾, Yoichi Matsuo²⁾ and Hiromitsu Takeyama²⁾

¹⁾Department of Surgery, Chita Kosei Hospital

²⁾Department of Gastroenterological Surgery, Nagoya City University Graduate School of Medical Sciences

A 65-year-old man was diagnosed with acute appendicitis and treated conservatively with antibiotics by a local physician. Temporary improvement was achieved, but he was evaluated at our hospital because of recurrence. Abdominal examination revealed a palpable, hard, elastic mass the size of a hen's egg in the right lower quadrant. The patient reported back discomfort when raising the right leg. CT revealed a mass with non-uniform contrast enhancement in the right lower quadrant and a 3×4-cm low-density area dorsally in the iliopsoas muscle. Abdominal US showed a patchy non-uniform area in the iliopsoas muscle. Acute appendicitis with abscess perforation into the iliopsoas muscle was diagnosed, and surgery was performed. As expected preoperatively, the tip of the appendix had perforated into the iliopsoas muscle, but no pus was present inside. Instead, a discharge of 2- to 3-mm pearl-like globules was seen. The appendix was resected, the globules were removed, and the inside of the iliopsoas muscle was rinsed. A drain was then placed and surgery was completed. Histopathology showed moderate atypia, but no evidence of malignancy. The diagnosis was mucinous cystadenoma of the appendix with myxoglobulosis. As of about 5 years after surgery, no recurrence has been identified.

Key Words: myxoglobulosis, mucinous cystadenoma of the appendix, low-grade appendiceal mucinous neoplasm
[Jpn J Gastroenterol Surg. 2016;49(12):1252-1260]

Reprint requests: Nobuyoshi Sugito Department of Surgery, Chita Kosei Hospital
81-6 Kowa, Nishitani, Mihama-cho, Chita-gun, 470-2404 JAPAN

Accepted: June 22, 2016