症例報告

成人虫垂間膜に発生し特異な形態を示した enterogenic mesenteric cyst の 1 例

久保田 将¹⁾ 塩入 誠信¹⁾ 工藤 真司¹⁾ 長谷川 誠¹⁾
小杉 千弘²⁾ 池田 重雄¹⁾ 永瀧 嘉嗣¹⁾

¹⁾ 玄々堂君津病院外科

²⁾ 帝京ちば医療センター外科

症例は 65 歳の男性で、糖尿病治療目的のため当院受診したが腹部造影 CT で回盲部に 70×40 mm 大で造影効果を伴う壁を有する嚢胞性腫瘤を指摘され当科紹介となった。大腸内視鏡検査では虫垂口に外方圧排像を認めたことから虫垂粘液嚢胞腺腫が疑われたが、注腸造影検査では虫垂は正常であり、傍虫垂に認められた鶏卵大の透亮像が腫瘤と一致すると思われた。このため悪性疾患の除外診断目的で手術となった。腹腔鏡で観察すると虫垂間膜に白色で表面平滑な鶏卵様の腫瘤を認め、回盲部切除を行った。肉眼所見では嚢胞と虫垂は交通なく、内腔には黄色透明な粘液を有し、粘液中 CEA は著明高値であった。病理組織学的検査で嚢胞内腔に単層の上皮細胞配列を認めたことから腸間膜真性嚢腫と診断された。術後経過良好で、術後第 13 病日に退院した。このような性状を有す腸間膜嚢腫の本邦報告例は検索した範囲で認めなかったため報告する。

キーワード：腸間膜嚢腫，虫垂間膜，成人

はじめに

リンパ嚢腫ではない成人腸間膜嚢腫が虫垂間膜に発生する症例は非常にまれである^{1)~4)}。今回、我々は特異な形態を有した虫垂間膜嚢腫の 1 例を経験したので報告する。

症 例

症例：65 歳，男性

主訴：なし。

既往歴：65 歳時，未治療の糖尿病，糖尿病性網膜症，糖尿病性腎症。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：糖尿病治療目的で当院受診し，臍精査のため施行された腹部造影 CT で回盲部に無症状の 70×40 mm 大で造影効果を伴う壁を有する嚢胞性腫瘤を指摘され当科紹介となった。

初診時現症：身長 168.5 cm，体重 60.0 kg，体温 36.3℃。腹部は平坦，軟で，体表から右下腹部に腫瘤は触知せず，圧痛も認めなかった。

大腸内視鏡検査所見：虫垂口は粘膜下腫瘤様に外方性圧排像を呈していた (Fig. 1)。

注腸造影検査所見：虫垂は正常に造影されたが，虫垂が騎乗するように鶏卵大の透亮像を認めた (Fig. 2)。

腹部 CT 所見：右骨盤内に 70×40×35 mm 大の造影効果を持つ境界明瞭な壁を有し，内腔は隔壁のない均

Fig. 1 Colonoscopy reveals that the mucosa of the appendiceal orifice appeared pushed from the outside.

Fig. 2 Barium enema examination shows a normal and smooth appendix, as well as a low density area near the cecum resembling a hen's egg.

Fig. 3 Abdominal enhanced CT reveals a 70×40×35-mm low-density lesion with enhanced walls in the right lower abdomen.

一でCT値から嚢胞と考えて矛盾しない腫瘤を認めた (Fig. 3)。

以上から、鑑別診断として cystic lesion を有す gastrointestinal stromal tumor, 両端が盲端となっている重複腸管、腸間膜嚢腫などを念頭に置き、さらに腫瘍マーカーの上昇も認めたことから、腫瘤摘出による悪性疾患除外診断目的で、通院糖尿病コントロール後、入院となった。

入院時検査所見：CEA 10.8 ng/ml と上昇を認めた。糖尿病については HbA1c 7.3%コントロール不良であったが治療開始前よりは改善し、尿糖は陰性となった。その他血液、生化学検査に異常を認めなかった。

手術所見：腹腔鏡で観察すると腹腔内に腹水や出血は認めなかった。虫垂に腫脹、発赤など異常所見は

Fig. 4 Operative findings reveal a white color and smooth, egg-shaped tumor in the mesoappendix, with no adhesion or invasion to any surrounding organs.

Fig. 5 a: The tumor wall was composed of white and elastic soft tissue. There was a small quantity of yellowish, serous, mucin-like products inside the tumor. b: This picture was taken from the mucosal site. There is no connection between the tumor and appendix.

なかった。虫垂間膜に白色、表面平滑な鶏卵様で周囲との癒着のない腫瘤を認めた (Fig. 4)。他の腸間膜、およびその他の臓器に異常所見は認めなかった。よって、回盲部切除を行った。

切除標本所見：嚢胞壁は白色で弾性のある約 5 mm 厚の軟部組織で、嚢胞内腔には黄色透明な粘液を認めた。また、虫垂内腔との明らかな交通はなかった (Fig. 5a, b)。粘液の CEA, CA19-9 はそれぞれ 79,700 ng/ml, 1,110 U/ml と著明高値であった。

病理組織学的検査所見：嚢胞壁は著明な線維芽細胞の増殖のみで構成されており、平滑筋層は見られなかった。内壁の一部に剥脱、消失せず単層に配列する異型のない粘液性上皮細胞と粘液の付着を確認できた (Fig. 6)。また、免疫染色検査による検討で、嚢胞壁の c-kit, CD34, SMA, S-100 はいずれも陰性であったことから間質細胞由来の腫瘍ではなく、かつ、内腔の単層上皮細胞は MUC2, MUC6 が陰性であり MUC5AS (±), caudal-type homeobox protein 2 (cdx-2) (+) であったことから腸管上皮細胞より分化したと考えて矛盾はなく、さらに、上皮細胞の N/C 比や増殖形態から悪性腫瘍の可能性は低いと考えられた。以上から、虫垂間膜原発の真性嚢腫と診断された。

術後経過：経過良好で特に合併症なく、第 13 病日に退院した。

Fig. 6 Microscopic findings revealed prominent fibroblastic proliferation and the lack of smooth muscle layer in the tumor wall. There were the single layer of non-atypical mucinous epithelium that had not been excoriated or were absent in the wall and small amount of mucin.

Table 1 Classification of mesenteric cysts advocated by de Perrot et al.

1	Cysts of lymphatic origin
a	Simple lymphatic cyst
b	Lymphangioma
2	Cysts of mesothelial origin
a	Simple mesothelial cyst
b	Benign cystic mesothelioma
c	Malignant cystic mesothelioma
3	Cysts of enteric origin
a	Enteric duplication cyst
b	Enteric cyst
4	Cysts of urogenital origin
5	Mature cystic teratoma (dermoid cyst)
6	Nonpancreatic pseudocysts
a	Traumatic origin
b	Infectious origin

考 察

腸間膜嚢腫は Benevieni が 1507 年に報告した 8 歳男児の剖検例が初回とされ⁵⁾、以来海外では 800 例超⁶⁾、本邦では 400 例超¹⁷⁾の報告がある。分類については現状で定まったものはないが、発生学的、組織学的見地から de Perrot ら⁸⁾は嚢腫の構造学的特徴や臨床的共通点を重視したサブグループ、すなわちリンパ系由来嚢腫、中皮由来嚢腫、腸管由来嚢腫、泌尿器系由来嚢腫、皮様嚢腫、仮性嚢腫からなるグループ分類を提唱している (Table 1)。発生頻度は報告によってばらつきがあるが、10,000～250,000 人に 1 人とされ比較的まれな疾患であり、その約 75%が小児症例であるとされる²⁾。

本邦における集計では本島ら¹⁾は 1985 年から 2002 年までの報告例の約 90%がリンパ管嚢腫であったと報告している。また、山口ら³⁾は enterogeneous cyst は mesenteric cyst 124 例中 1 例 (0.8%) と報告している。

腸間膜嚢腫の部位別発生率として井上ら⁴⁾は小腸間膜が 50%、結腸間膜別には横行結腸 20%、S 状結腸 10%、腸間膜根部 10%、上行結腸 5.7%、下行結腸 2.9%と続き盲腸、虫垂は各 1 例 (1.4%) と集計している。このように成人における腸管由来の虫垂間膜嚢腫症例は非常にまれとなる。実際に我々が医学中央雑

Table 2 CEA level in mesenteric cysts

No.	Author/Year	Age, Sex	CEA in serum (ng/ml)	CEA in cyst (ng/ml)
1	Terasawa ¹²⁾ /1991	47, F	1.0	1.0
2	Tanaka ¹³⁾ /1992	43, F	W.N.L	55.0
3	Inoue ⁴⁾ /1993	68, M	2.7	1.7
4	Inoue ⁴⁾ /1993	46, F	1.3	150.0
5	Ueda ¹⁴⁾ /1998	44, M	3.3	137.2
6	Kamesui ¹⁵⁾ /2000	49, F	0.1	<0.1
7	Sano ¹⁶⁾ /2001	67, M	none	0.7
8	Motojima ¹⁾ /2004	54, F	none	0.5
9	Murota ¹⁷⁾ /2004	69, F	none	9.4
10	Our Case	65, M	10.8	79,700.0

誌で 1977 年から 2015 年 1 月まで「虫垂間膜」, 「腸間膜嚢腫」をキーワードとして検索しえた範囲では, 自験例以外に成人虫垂間膜発症例はなかった (会議録を除く)。

その他の文献的考察としては, 性差は明らかでなかった¹⁹⁾。また, 腸間膜嚢腫は自験例の如く嚢胞腔に上皮細胞を有する真性嚢腫と有さない仮性嚢腫に分類され¹⁰⁾, 顕微鏡的考察, あるいは免疫学的考察上, 上皮細胞の特徴やその欠損の有無が嚢腫の成因を検討する際に有用な場合もある⁸⁾とされているが, 統計学的に二者を区分し論じた報告はなかった。

自験例の考察であるが, まず虫垂間膜原発の腸間膜嚢腫が非常にまれであるのは, 井上ら⁴⁾の部位別発生率の集計から各腸間膜部位別の発生率は各腸管の機能性や腹腔内の占居部位に依存するのではなく, 各腸間膜面積にある程度比例するので, 面積が極小である虫垂間膜における発生頻度も自ずと低くなるためではないかと推測する。

次に, 自験例は嚢胞内腔の上皮細胞が免疫染色検査で腸管由来と診断されたことから de Perrot ら⁸⁾の分類の 3. Cysts of enteric origin に該当すると考えられた。腸管由来の嚢腫の成因としては胎生期の腸管分化は第 5 週までは不完全な内腔を有すが, その後上皮細胞増殖とともに内腔が消失し, 第 12 週になり再び空砲の融合化によって内腔を形成するとされ, この過程に何らかの異常を来すと enteric cyst や duplication が生じると説明されている¹⁰⁾¹¹⁾。自験例では肉眼的に虫垂や他の腸管との交通を認めなかったことから, 胎生期の分化過程において腸間膜内に迷入した上皮細胞が産生した粘液の排泄, 代謝経路の欠損によって嚢状に腫瘍化したものと推測された。一方, 嚢胞壁に平滑筋層や神経叢を有さず正常腸管構造を認めなかったことから duplication は除外され, enteric cyst と診断された。

さらに, いくつかの成人報告例では血中腫瘍マーカーは検査されていても, 内容物の腫瘍マーカー, 特に CEA について検討している報告は本邦で 9 例^{1)4)12)~17)}に過ぎず, 自験例のような著明上昇を示す報告例はなかった (Table 2)。しかし, 他の報告同様, 自験例においても粘液中 CEA 上昇が腸間膜嚢腫の予後診断に有用であったとはいいがたかった。ただし, 自験例においては術前の血中 CEA は上昇していたが術後は正常値になったことから, 粘液中 CEA 高値が術前から術後に呈した血中 CEA 推移の原因とも考えられたので, 粘液中の CEA 上昇を確認したことは多臓器の悪性疾患の除外診断に意義があったと考える。

治療は手術が原則とされる。自験例では術前診断が困難であったため診断を兼ねて腹腔鏡手術を選択し, まれではあるが腸間膜嚢腫腺癌の本邦報告例¹⁸⁾もあることから, 嚢腫の遺残回避目的で回盲部切除を行った。術後 2 年が経過し再発は指摘されていないが, 引き続き厳重な経過観察を予定している。

なお, 本文の要旨は第 12 回日本消化器外科学会大会 (2014 年 10 月, 第 22 回 JDDW, 神戸) で報告した。

利益相反: なし

文献

- 1) 本島 柳司, 山本 義一, 高石 聡, 舟波 裕, 所 義治, 関 幸雄. 術前卵巣腫瘍と診断した腸間膜嚢腫の1例. 日本臨床外科学会雑誌. 2004;65(7):1952-6.
- 2) Vanek VW, Phillips AK. Retroperitoneal, mesenteric, and omental cysts. Arch Surg. 1984;119:838-42.
- 3) 山口 宗之, 野中 杏栄, 菊池 裕, 鈴木 孝雄, 竹内 節夫, 栗津 三郎, ほか. 術前腹部超音波検査で診断し得た腸間膜嚢腫の1治験例—本邦報告例の統計的観察—. 日本小児外科学会雑誌. 1977;13:771-8.
- 4) 井上 匡美, 竹中 博昭, 角村 純一, 岩瀬 和裕, 三木 康彰, 別所 俊哉, ほか. 腸間膜嚢胞内容液中の carcinoembryonic antigen を検索した2例. 日本消化器外科学会雑誌. 1993;26(4):1110-4.
- 5) Vaughn AM, Less WM, Henry JW. Mesenteric cysts. A review of the literature and report of a calcified cyst of the mesentery. Surgery. 1948;23(2):306-17.
- 6) Liew SC, Glenn DC, Storey DW. Mesenteric cyst. Aust NZ Surg. 1994;64(11):741-4.
- 7) 黒岩 実, 松山 四郎, 鈴木 則夫, 倉繁 徹昭, 高橋 篤, 畠山 信逸, ほか. 術前診断し得た腸間膜嚢腫の2例—本誌報告例の集計と超音波検査の有用性について—. 日本小児外科学会雑誌. 1988;24:1122-31.
- 8) de Perrot M, Bründler M, Tötsch M, Mentha G, Morel P. Mesenteric cysts. Toward less confusion? Dig Surg. 2000;17:323-8.
- 9) 池口 正英, 西土井 英昭, 工藤 浩史, 村上 敏, 正木 忠夫, 谷口 遥, ほか. 成人腸間膜乳嚢嚢腫の1例. 外科. 1992;54:888-90.
- 10) 赤松 大樹, 中島 邦也, 松田 康雄, 藤川 正博, 位藤 俊一, 久米 庸一, ほか. 仮性嚢胞を併存した成人腸間膜真性嚢腫の1例. 日本消化器外科学会雑誌. 1990;23(10):2429-32.
- 11) Bremer JL. Diverticula and duplications of the intestinal tract. Arch Pathol Lab Med. 1944;38:132-40.
- 12) 寺澤 康之, 城所 龍一, 堤 靖彦, 徳永 忠司, 品川 正, 小林 真, ほか. 成人腸間膜嚢腫の1例. 袋井市民病院研究誌. 1991;2(1):12-4.
- 13) 田中 千凱, 竹之内 直人, 大下 裕夫, 種村 廣巳, 加地 秀樹. 成人腸間膜嚢胞の2例. 臨床外科. 1992;47(4):529-32.
- 14) 上田 佳秀, 山下 善正, 市川 幹郎, 近藤 俊文, 千葉 勉. 内容液中 CEA が高値を示した腸間膜嚢胞の1例. 内科. 1998;81(4):757-9.
- 15) 亀水 忠, 宗本 義則, 呉 哲彦, 三井 毅, 浅田 康行, 飯田 嘉郎. 成人横行結腸間膜嚢胞の1例. 日本臨床外科学会雑誌. 2000;61(1):186-9.
- 16) 佐野 純, 山田 誠, 梅本 敬夫. 腹腔鏡下に摘出した成人腸間膜乳び嚢胞の1例. 日本内視鏡外科学会雑誌. 2001;6(6):569-74.
- 17) 室田 真希子, 加藤 勤, 佐野村 隆行, 鈴木 誠裕, 大谷 弘樹, 石田 数逸, ほか. 約6年の経過で緩徐な増大傾向を示した腸間膜嚢腫 (mesenteric cyst) の1例. 臨床放射線. 2004;49(13):1852-6.
- 18) 原川 伊寿, 蜂須賀 喜多男, 山口 晃弘, 磯谷 正敏, 石橋 宏之, 加藤 純蘭, ほか. 腸間膜嚢胞腺癌の1例. 日本消化器外科学会雑誌. 1987;20(10):2397-400.

CASE REPORT

An Adult Unique Enterogenic Mesenteric Cyst of the Mesoappendix

Sho Kubota¹⁾, Masanobu Shioiri¹⁾, Shinji Kudo¹⁾, Makoto Hasegawa¹⁾,
Chihiro Kosugi²⁾, Shigeo Ikeda¹⁾ and Yoshitsugu Nagashima¹⁾

¹⁾Department of Surgery, Gengendo Kimitsu Hospital

²⁾Department of Surgery, Teikyo University Chiba Medical Center

A 65-year-old man with diabetic syndrome was introduced to our department because his abdominal CT scan incidentally revealed a 70×40-mm cystic lesion with an enhanced wall around the cecum. The colonoscopic findings suggested the presence of a mucinous cyst adenoma of the appendix since the orifice of the appendix was mounted as if were pushed from the outside. However, barium enema revealed a normal appendix on tumor shadow. We performed an ileo-cecal resection in order to exclude malignancy diagnoses. A laparoscopic resection was done after confirming the tumor resembled a hen's egg leading to the mesoappendix without any invasion or adhesion to any other surrounding organs. Macroscopic findings revealed there was no connection between the tumor and the appendix. There was a small quantity of mucin-like product in the tumor, and the CEA concentration of the mucin was remarkably elevated. The tumor was diagnosed to be an appendiceal mesenteric cyst on the basis of microscopic analysis. The patient had a good course and was discharged on the 13th postoperative day. To the best of our knowledge, there is no prior report in the Japanese literature describing an adult case of appendiceal mesenteric cyst. Therefore, we report this case as an example of a unique and very rare appendiceal mesenteric cyst.

Key Words: mesenteric cyst, mesoappendix, adult

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2016;49(9):911-917]

Reprint requests: Sho Kubota Department of Surgery, Gengendo Kimitsu Hospital
4-7-20 Higashi Sakata, Kimitsu, 299-1144 JAPAN

Accepted: April 27, 2016