症 例

鼠径ヘルニアを契機に発見された腹膜偽粘液腫の1例

北海道がんセンター消化器外科¹⁾, 同 病理部²⁾

濱 口 純¹⁾ 篠 原 敏 樹¹⁾ 前 田 好 章¹⁾

二 川 憲 昭¹⁾ 濱 田 朋 倫¹⁾ 鈴 木 宏 明²⁾

腹膜偽粘液腫は原発巣の良悪性にかかわらず、粘液瘤が破綻し粘液が腹腔内に多量に貯留する病態である。今回われわれは鼠径ヘルニアを契機に発見された腹膜偽粘液腫の1症例を経験した。症例は70歳、男性。鼠径ヘルニアの手術時にヘルニア囊内の粘液を指摘された。病理検査にて腹膜偽粘液腫の疑いとなった。精査にて回盲部の嚢胞性病変と、CEA 高値を認めたため虫垂嚢胞腺癌、腹腔内穿破と診断した。手術では肥大した虫垂と粘液塊を認めた。貯留粘液を摘出した後、右半結腸切除術、右骨盤腹膜剝離、大網部分切除術を施行した。その後、大量のブドウ糖液にて腹腔内を洗浄し可及的に粘液および粘液に包まれた腫瘍細胞の除去を行った。最終的に病理診断で虫垂原発の low grade mucinous neoplasm, disseminated peritoneal adenomucinosis の診断に至った。若干の文献的考察を加えて報告する。

索引用語：腹膜偽粘液腫、鼠径ヘルニア

緒 言

腹膜偽粘液腫は原発巣の良悪性を問わず、粘液瘤が破綻し粘液が腹腔内に多量に貯留する病態である。組織学的に悪性度が低いとされる症例でも難治性で、悪性疾患に準じた治療が必要な疾患とされる。今回われわれは鼠径ヘルニアを契機に発見された腹膜偽粘液腫の1症例を経験したので報告する。

症 例

患者：70歳、男性。

主訴：左鼠径部腫大、疼痛。

既往歴：5年前に右鼠径ヘルニアにて手術。

現病歴：突然左鼠径部腫大を自覚し近医受診した。

初診時立位で外鼠径輪から陰茎根部まで腫大するヘルニアであった。堅く触れ痛みを伴っていた。手動的に還納可能であった。約3週後左鼠径ヘルニア根治術を施行された。術中所見ではヘルニアはindirectであり、ヘルニア囊内にゼリー状の粘液の貯留を認められた。腸管や大網の脱出は認められなかった。Paritex mesh によるリヒテンシュタイン法にて修復が行われ

た。病理組織検査にてヘルニア囊内に粘液成分を多量に認め腹膜偽粘液腫の疑いがもたれた (Fig. 1)。腹部造影CT、超音波検査にて回盲部の嚢胞性病変および周囲の粘液貯留所見が指摘され、手術目的にて当科紹介された。

現症：腹部平坦・軟、圧痛無し。両鼠径部に手術創を認める。

Fig. 1. Pathological findings of the hernia sac. Mucinous component (arrow head) was included in the hernia sac (arrow). (H.E. stain)

2012年3月8日受付 2012年6月28日採用

〈所属施設住所〉

〒003-0804 札幌市白石区菊水四条2丁目3-54

Fig. 2. A. Enhanced CT showed an enlarged appendix and the fluid collection (arrow) around it.

B. PET-CT showed abnormal uptake in the appendix (arrow head).

血液検査所見：血算・生化学に特記事項なし。腫瘍マーカーはCEA 9.0ng/mLと上昇を認めたがCA19-9は正常範囲内であった。

下部消化管造影所見：虫垂開口部に隆起性病変認め、隆起の辺縁は平滑であった。

下部消化管内視鏡：虫垂根部に腫瘍性病変は認めず、虫垂からの粘液の流出も認めなかった。盲腸は腸管外からの圧迫を認めた。

CT：肥大した虫垂と、周囲に液体成分の貯留を認めた (Fig. 2A)。

PET-CT：虫垂への集積を認めた (Fig. 2B)。

手術所見：右結腸窩に肥大した虫垂と右側腹部中心に粘液塊を認め、骨盤腔にも粘液塊の貯留を認めた (Fig. 3)。また右横隔膜下、大網、S状結腸間膜表面への粘液の付着を認めた。しかしヘルニア修復部のmeshの露出はなく、粘液の貯留も見られなかった。貯

Fig. 3. Operative findings.

The enlarged appendix and the mucus lump which followed the appendix (arrow) were shown, and another mucus lump's storage was also observed in the pelvic space (arrow head).

留粘液塊の可及的摘出後、右半結腸切除術、右側壁および骨盤腹膜剝離、大網切除術を施行した。腹腔内洗浄の後さらにその後5%ブドウ糖液3,000mLにて腹腔内を洗浄した。

切除標本所見：虫垂末梢は径2.5cmに腫大し先端は破裂していた。内腔より虫垂周囲へ粘液が流出していた (Fig. 4)。

病理組織学的所見：虫垂内腔の拡張および粘液を有する異型上皮の増殖を認めた。洗浄細胞診では粘液成分を多量に認めた。虫垂先端の破裂と周囲の粘液貯留所見より、最終的に虫垂原発の low grade mucinous neoplasm¹⁾による腹膜偽粘液腫、Ronnet²⁾らの分類による disseminated peritoneal adenomucinosis (DPAM) の診断に至った (Fig. 5)。

経過：術後経過良好でCEAは速やかに正常化した。補助化学療法にてLV/5-FU療法を6カ月行った。現在手術後12カ月経過したが、腫瘍マーカーの再上昇なく、CTにて粘液の貯留や腫瘍性病変を認めず無再発生存中である。

考 察

腹膜偽粘液腫は明確な病理学的定義はないが、原発巣の良悪性を問わず腹腔内に粘液産生細胞が播種性に散布し、産生されたムチンが粘液性腹水として多量に貯留した病態と理解³⁾され、Werthが1884年最初に報告⁴⁾した。近年、組織学的にRonnetら²⁾の分類を用いて表記し悪性度を測ることが多いが、臨床的には難治で

Fig. 4. Histopathological macroscopic findings. Periphery of the appendix enlarged to 2.5cm in diameter, and the top of the appendix was ruptured. Mucus had leaked from around the appendix to the abdominal cavity.

Fig. 5. Microscopic findings showed the dilation of the appendiceal cavity and the multiplication of the atypical epithelium with mucus. (H.E. stain)

Table 1. Reported cases of pseudomyxoma peritonei presented with hernia.

No.	Author	Origin	Sex	Age	Laterality	Prognosis	Alive/dead	Publication
1	Imai ⁶⁾	appendix	male	53	rt	2Y6M	alive	1988
2	Yamamoto ⁷⁾	unknown	male	62	lt	2Y1M	alive	1989
3	Matsuda ⁸⁾	appendix	male	55	rt	3Y	alive	1996
4	Iguchi ⁹⁾	appendix	male	74	rt	1Y6M	alive	1999
5	Uchida ¹⁰⁾	appendix	female	85	rt femoral	3W	alive	2000
6	Yano ¹¹⁾	appendix	male	31	lt	6M	alive	2000
7	Tanaka ¹²⁾	appendix	male	73	rt	10M	alive	2001
8	Uchiyama ¹³⁾	ileocecal	female	76	umbilical	2Y	alive	2004
9	Shinohara ¹⁴⁾	urachus	male	54	lt	7Y	alive	2006
10	Toriguchi ¹⁵⁾	appendix	male	67	rt	1Y8M	alive	2011
11	Our case	appendix	male	70	lt	12M	alive	

あり悪性疾患に準じて扱われる。

原発部位としては従来、女性では卵巣・男性では虫垂が最多と思われてきた。しかし近年、免疫組織学的、分子生物学的な手法を用いた検索により、女性の卵巣と思われてきた症例であっても虫垂原発であり、腫瘍の破裂から卵巣転移を来し、腹膜偽粘液腫に至った症例が多いことが示唆されている⁵⁾。

鼠径ヘルニアを契機に腹膜偽粘液腫が診断されることはまれである。医学中央雑誌刊行会 Web 版にて1983年から2011年10月まで「ヘルニア」と「粘液腫」をキーワードとし、検索したものは10件であった (Table 1)^{6)~15)}。本症例を含め検討を行った。11症例中鼠径ヘルニアを呈したものは9例で、大腿ヘルニア、臍ヘルニアがそれぞれ1例と鼠径ヘルニアでの発症が

多かった。鼠径・大腿ヘルニア内腫瘍の発見症例では右側に多いとの過去の報告があるが⁷⁾、今回検索しえた腹膜偽粘液腫症例ではヘルニアの発生部位に左右差は見られなかった。腹腔内に粘液塊が充満してきている状態では、一様に腹圧がかかるため左右差が出なかったと思われる。性別では男性に多く、9例であった。原発部位は虫垂が8例、回盲部1例と虫垂周囲が腹膜偽粘液腫の責任病巣であることがほとんどであった。

治療法に関しては、ヘルニアにて発見の場合、すでに腹膜播種をきたした病態のため腹膜偽粘液腫に準じた原発巣拡大切除、粘液除去および補助療法が行われる。腹膜偽粘液腫では粘液の完全除去が予後改善につながると思われ、多くの症例で粘液除去法に工夫がされている。室温の5% dextrose 溶液にて粘液塊が溶出し

やすいとの Green ら¹⁶⁾の報告や, Beller ら¹⁷⁾により dextran 溶液での有効性が報告されていることから, 糖液での洗浄が用いられることが多い。抗腫瘍薬の腹腔内投与の有用性も示された¹⁸⁾後, heated intraperitoneal chemotherapy (HIPEC) など改良を加えた治療も行われている。本症例では右腹腔内に局限していたことより, 切除は右下腹部に局限し, 耐術能を考慮し大量のブドウ糖液にて腹腔内洗浄を行い, 可及的に粘液および腫瘍細胞の除去を行った。近年, 大腸癌に準ずる術後化学療法での予後改善の報告が散見されるようになってきている。本症例では悪性度が境界領域の腫瘍であって悪性腫瘍の診断に至らなかったが, 腹膜偽粘液腫の病態を考えると腫瘍細胞を制御が今後の QOL を保つことにつながると考え, LV/5-FU 療法を行った。

結 語

鼠径ヘルニアを契機に発見された腹膜偽粘液腫の 1 例を経験した。若干の文献の考察を加えて報告した。

謝 辞

稿を終えるに至りご助言いただいた, みやざき外科・ヘルニアクリニック宮崎恭介先生, ジェネティックラボ病理解析センター高木芳武先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Misdraji J, Yantiss RK, Graeme-Cook FM, et al: Appendiceal Mucinous Neoplasms: A Clinicopathologic Analysis of 107 Cases. *Am J Surg Pathol* 2003; 27: 1089—1103
- 2) Ronnet BM, Yan H, Kurman RJ, et al: Patients with pseudomyxoma peritonei associated with disseminated peritoneal adenomucinosis have a significantly more favorable prognosis than patients with peritoneal mucinous carcinomatosis. *Cancer* 2001; 92: 85—91
- 3) 大谷泰介, 瀧井康公: mFOLFOX6を含む集学的治療により長期間 CR 継続中である虫垂癌原発腹膜偽粘液腫の 1 例. *日臨外会誌* 2010; 71: 1061—1065
- 4) Werth R: Klinische und anatomische Untersuchungen zur Lehre von den Bauchgeschwülsten und der Laparatomie. *Pseudomyxoma peritonei*. *Arch Gynecol Obstet* 1884; 24: 100—118
- 5) Bevan KE, Mohamed F, Moran BJ: Pseudomyxoma peritonei. *World J Gastrointest Oncol* 2010; 15: 44—50
- 6) 今井博之, 木元正利, 長野秀樹 他: 鼠径ヘルニアの手術時に診断し治療した虫垂原発腹膜偽粘液腫の 1 例. *川崎医会誌* 1988; 14: 645—649
- 7) 山本秀和, 金子一郎, 野浦 素 他: 鼠径ヘルニアで発症した腹膜偽粘液腫の 1 例. *高山赤十字病紀* 1989; 13: 99—103
- 8) 松田充宏, 足立信也, 森島 勇 他: 鼠径ヘルニア内容から診断された虫垂原発の腹膜偽粘液腫の 1 例. *日消外会誌* 1996; 29: 99—103
- 9) 井口智雄, 永井信行, 高橋雅明 他: 鼠径ヘルニアで発症した腹膜偽粘液腫の 1 例. *外科治療* 1999; 80: 506—508
- 10) 内田正昭, 木許健生, 大野 智 他: 発見契機が異なる虫垂粘液嚢胞腺腫の 3 例. *日臨外会誌* 2000; 61: 995—999
- 11) 矢野文章, 小村伸朗, 柏木幸幸 他: 鼠径ヘルニアに対する手術を契機に発見された虫垂原発腹膜偽粘液腫の 1 例. *外科* 2000; 62: 831—833
- 12) 田中玲人, 待木雄一, 朽名 靖 他: 鼠径ヘルニアを契機に発見された腹膜偽粘液腫の 1 例. *臨外* 2001; 56: 845—848
- 13) 内山哲之, 小野地章一, 渡辺和宏 他: 成人臍ヘルニア発症が発見契機となった腹膜偽粘液腫の 1 例. *外科* 2004; 66: 243—246
- 14) Shinohara T, Misawa K, Sano H, et al: Pseudomyxoma peritonei due to mucinous cystadenocarcinoma in situ of the urachus presenting as an inguinal hernia. *Int J Clin Oncol* 2006; 11: 416—419
- 15) 鳥口 寛, 遠藤真一郎, 坪野充彦: 鼠径管内粘液腫瘍で発症し半年後に発見された虫垂粘液嚢胞腺腫の 1 例. *日臨外会誌* 2011; 72: 916—920
- 16) Green N, Gancedo H, Smith R, et al: Pseudomyxoma peritonei — Nonoperative management and biochemical findings. *Cancer* 1975; 36: 1834—1840
- 17) Beller FK, Zimmermann RE, Neirich H: Biochemical identification of the mucus of pseudomyxoma peritonei as the basis for mucolytic treatment. *Am J Obstet Gynecol* 1986; 79: 155—161
- 18) Sugaebaker PH, Chang D: Results of treatment of 385 patients with peritoneal surface spread of appendiceal malignancy. *Ann Surg Oncol* 1999; 6: 727—731

A CASE OF PSEUDOMYXOMA PERITONEI PRESENTED WITH AN INGUINAL HERNIA

Jun HAMAGUCHI¹⁾, Toshiki SHINOHARA¹⁾, Yoshiaki MAEDA¹⁾, Noriaki FUTAKAWA¹⁾,
Tomonori HAMADA¹⁾ and Hiroaki SUZUKI²⁾

Departments of Surgery¹⁾ and Pathology²⁾, Hokkaido Cancer Center

Pseudomyxoma peritonei is a clinical condition caused by ruptured mucus lake, and large amounts of mucus fill the abdominal cavity with or without malignant potential. We experienced a case of pseudomyxoma peritonei presented with an inguinal hernia. The case involved a 70-year-old man operated on for an inguinal hernia. He was pointed out a mucus lump in the hernia sac during the operation. Pseudomyxoma peritonei was likely from pathological investigations. Since the serum CEA rose and a cystic lesion of the ileocecal area was detected, it was finally diagnosed appendiceal cyst adenocarcinoma which had ruptured to the abdominal cavity. In the operation, an enlarged appendix and a mucus lump were identified. After removal of the mucus lump, right hemicolectomy, peritoneum excision of the right pelvic space, and partial omentectomy were performed. Then we washed the inside of the abdominal cavity with a lot of dextrose solution to remove the mucus and wrapped carcinoma cells in the mucus as much as possible. The final pathological diagnosis was low grade mucinous neoplasm, disseminated peritoneal adenomucinosis originated from the appendix. We report this case with some bibliographic consideration.

Key words : pseudomyxoma peritonei, inguinal hernia