

腸重積で発症した小児虫垂粘液嚢胞の1例

小児外科 畠山 理、在間 梓、中井優美子

Key words : 虫垂粘液嚢胞、腸重積、小児

はじめに

虫垂粘液嚢胞は小児では比較的まれな疾患であるが、腹腔内破裂すると腹膜偽粘液腫の原因となるため早期診断が重要である。今回、腸重積で発症した小児虫垂粘液嚢胞の1例を経験したので報告する。

症例

症例：14歳、女児

主訴：腹痛

既往歴：特記すべきことなし

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：以前より時折腹痛を訴えることはあったが自然軽快していた。3日前より腹痛があり、その後一旦軽快していたが、2日後に腹痛が増強してきたため近医を受診、腹部超音波検査、腹部CT検査で腹腔内嚢胞性病変および腸重積像を認めたため、精査加療目的で

当科紹介となった。

来院時現症：自力歩行可。腹痛は間欠的。

嘔気・嘔吐なし、下痢・血便なし。

腹部：平坦かつ軟、右下腹部に圧痛あるも反跳痛なし。筋性防御なし。

前医腹部CT検査所見：嚢胞を先進部とする腸重積像が認められた。(図1)

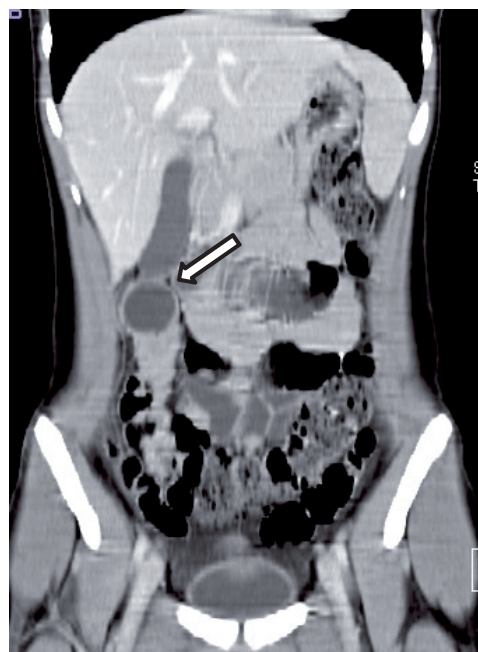
当院来院後、腹部超音波検査を施行した。

来院時腹部超音波検査所見：回腸に50×30 mm 大の瓢箪型の嚢胞性腫瘍を認め、腫瘍を先進部とする腸重積像が認められた。嚢胞性腫瘍の壁は筋層、粘膜下層が描出され消化管様であった。(図2)

腹部超音波検査所見から、腸重積が認められたため整復を目的として注腸造影検査および整復を施行した。



図1 前医腹部CT検査
嚢胞 (←) を先進部とする腸重積像が認められた。



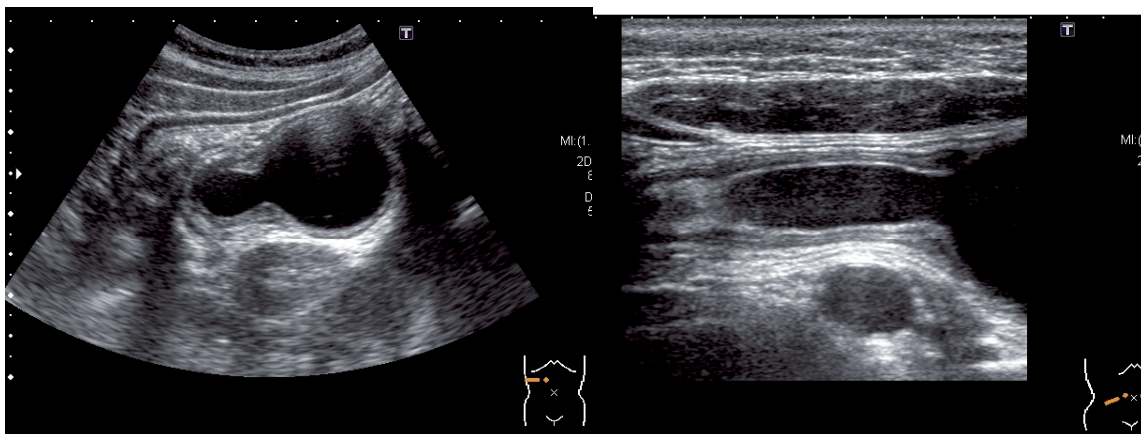
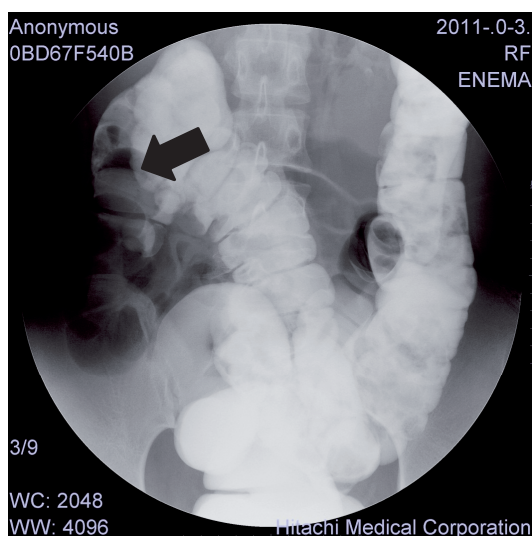
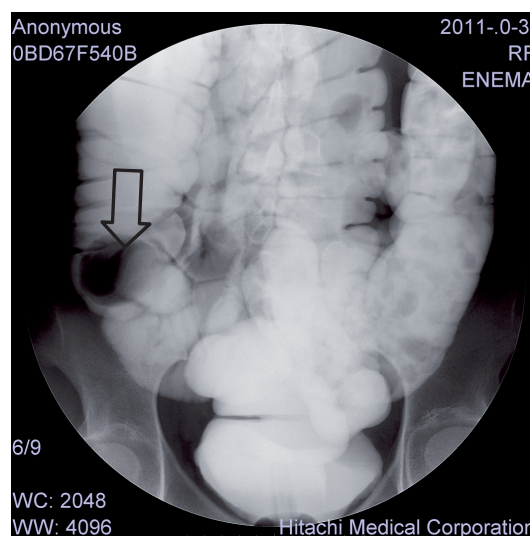


図2 来院時腹部超音波検査
回腸に50×30 mm大の瓢箪型の嚢胞性腫瘍を認め、腫瘍を先進部とする腸重積像が認められた。



整復前



整復後

図3 注腸造影検査
整復前は上行結腸肝彎曲部に蟹爪様陰影 (←) を認めたが整復された。
しかし整復後も盲腸に陰影欠損像 (↓) が残存した。

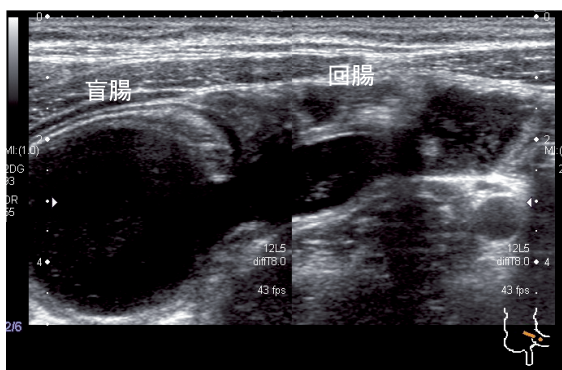


図4 注腸整復後腹部超音波検査
盲腸に嚢胞の先端が認められ、茎は回腸末端に認められた。

注腸造影検査所見：回盲部に陰影欠損像を認めたが、100cmH₂O、1回で整復した。しかし整復後も回盲部に陰影欠損像が残存した。

(図3)
腸重積整復後に質的診断を目的として、もう一度超音波検査を施行した。

注腸整復後腹部超音波検査所見：盲腸に嚢胞の先端が認められ、茎は回腸末端に認められた。ポリープやMeckel憩室の翻転が疑われた。(図4)

以上の所見より、確定診断はつかなかったが腸管内腫瘍を先進部とする腸重積と診断、腸管内腫瘍が残存している限り、腸重積を容易に反復すると判断し、同日緊急手術を施行した。

手術所見：右下腹部に3 cmの交互切開法で開腹し、ウーンドリトラクターを装着した腹腔内には少量の漿液性腹水の貯留が認められた。盲腸を創外に脱転したところ、著明に腫大した虫垂根部が盲腸内に重積している状態であったため、Hutchinson手技に基づき盲腸を圧迫しつつ、虫垂を牽引していたところ、虫垂壁を損傷し、無色透明の内容液が流出、その後粘液の流出を認めた。内容液の流出に伴い重積が解除されたが、触診上虫垂根部に腫瘤が残存しているため回盲部切除を施行した。

病理組織所見：盲腸内腔の虫垂開口部付近に25×25 mm大の嚢胞状の粘膜下腫瘤が認められ、虫垂内腔と連続していた。虫垂翻転が先に存在して内腔に粘液が貯留したものか、粘液貯留により盲腸内腔に粘液が貯留したものか成因は不明であるが、過形成による虫垂粘液嚢胞が考えられた。悪性所見は認められなかった。(図5)

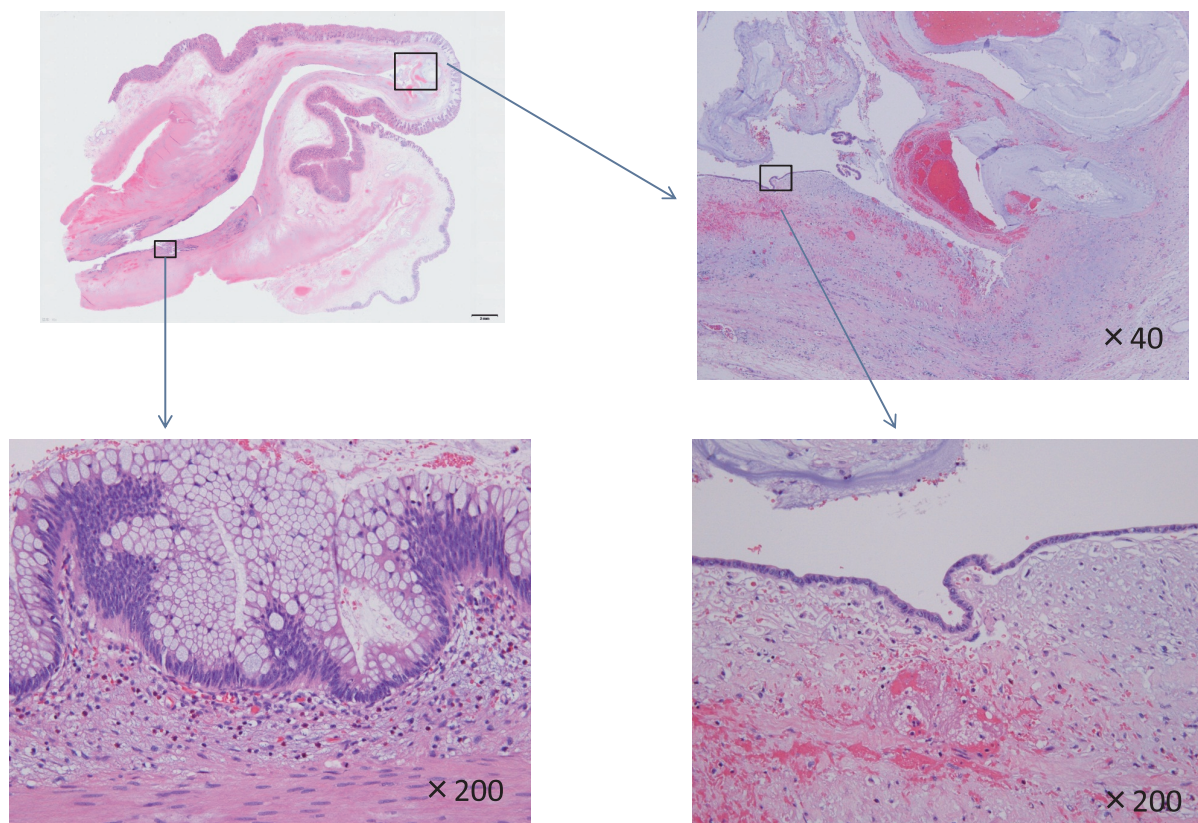


図5 病理組織所見
虫垂粘液嚢胞、過形成の所見であった。悪性所見は認められなかった。

術後経過：術後経過は順調で術後8日目に退院した。術後2年の現在、再発は認めていない。

考察

虫垂粘液嚢胞は、粘液貯留のため虫垂の一部または全体が拡張した状態で、Rokitansky¹⁾が1866年に最初に報告した。

発生頻度は0.08～4.1%²⁾と比較的稀であるとされている。好発年齢は50～60代の女性で、小児例は散見されるのみである。

Kalomonら³⁾によれば発生には①虫垂根部の閉塞・狭窄、②閉塞内腔の持続的粘液産生、③内腔の無菌的環境保持の三要素が揃うことが必要とされている。

組織学的分類ではHigaら⁴⁾の分類が代表的であり、①過形成(hyperplasia)、②粘液嚢胞腺腫(mucinous cystadenoma)、③粘液嚢胞腺癌(mucinous cystadenocarcinoma)の3つに分類される。過形成の場合は問題ないが、良性である

粘液嚢胞腺腫であっても、その破裂により粘液嚢胞腺腫と同様に腹膜偽粘液腫の原因となりえ⁵⁾、腹膜偽粘液腫となった場合は嚢腫の良悪性にかかわらず臨床的に悪性経過をたどることが知られている⁶⁾。

臨床症状としては、右下腹部に腫瘤触知、不快感、疼痛を訴えることもあるが、無症状であることも多い⁷⁾。また本疾患に特異的な症状はなく、虫垂炎や自験例のように腸重積を併発して発見されるもののほかに、偶発的に指摘されることもある。

診断は、腹部超音波検査やCT検査等の画像所見で、回盲部の嚢胞性病変が描出されることによって疑われる^{8,9)}が、特異的な所見に乏しいため虫垂悪性腫瘍や腸管膜嚢腫、腸管重複症等との鑑別が必要となる。大腸内視鏡検査は虫垂開口部がドーム状に隆起するvolcano signが有用とされている¹⁰⁾。

治療は画像診断での良悪性の鑑別が困難であること、破裂した場合に腹膜偽粘液腫へと進展する可能性があることから、早期手術が必要とされている^{11,12)}。近年は術前診断の上昇に伴い、腹腔鏡下手術の報告例が増加している^{11,12)}。

自験例では、術前に回盲部嚢胞疾患を指摘し得ていたが、小児症例が少ないこともあって、虫垂粘液嚢腫を鑑別するにいたらず、術前診断ができなかった。術前に大腸内視鏡検査を施行していれば確定診断がついていた可能性が高く、腸重積が整復できていたことを考慮すると、大腸内視鏡検査を行わなかったことが反省点である。

結語

腸重積で発症した小児虫垂粘液嚢胞の1例を経験した。虫垂粘液嚢胞の小児例はまれではあるが、侵襲の少ない術式選択、合併症のない手術遂行のためには、本疾患を念頭に置き、術前診断をつけて治療に臨む態度が必要である、と考えられた。

引用文献

- 1) Rokitsansky CF : Beitrage zur Erkrankungen der Wurmfortsatzentzündung. Wien Med Press 26 : 428-435, 1866
- 2) Woodruff R et al : Benign and malignant cystic tumors of the appendix. Surg Gynecol Obstet 71 : 750-755, 1940
- 3) Kalmon EH et al : Mucocele of the appendix. AJR 72 : 432-435, 1954
- 4) Higa E et al : Mucosal hyperplasia, mucinous cystadenoma and mucinous cystadenocarcinoma of the appendix : A re-evaluation of appendical "Mucocele". Cancer 32 : 1525-1542, 1973
- 5) 石濱陽子ほか：術前に卵巣腫瘍茎捻転を疑った虫垂粘液嚢胞茎捻転の1例. 姫路赤十字病院誌 31 : 4-7, 2007
- 6) Mann WJ et al : The management of pseudomyxoma peritonei. Cancer 66 : 1636-1640, 1990
- 7) 長谷和夫ほか：虫垂粘液嚢胞腺腫. 別冊日本臨床領域別症候群シリーズ, 消化管症候群 (下巻) 6. 日本臨床社, 大阪, 738-741, 1994
- 8) Kim SH et al : Mucocele of the appendix: ultrasonographic and CT findings. Abdom Imaging 23 : 292-296, 1998
- 9) Bennet GL et al : CT diagnosis of mucocele of the appendix in patients with acute appendicitis. AJR 192, W103-110, 2009
- 10) 石川勉ほか：虫垂腫瘍診断における画像診断の役割. 胃と腸 25 : 1143-1154, 1990
- 11) 中村公治郎ほか：腹腔鏡下手術を施行した虫垂粘液嚢腫の2例：本邦報告例の集計. 消化器外科 34 : 646-651, 2011
- 12) 川口耕ほか：虫垂粘液嚢胞腺腫に対する腹腔鏡下手術の経験. 日鏡外会誌 16 : 337-342, 2011