

虫垂子宮内膜症による虫垂重積症の一例

京都第二赤十字病院 消化器内科

東 祐圭 河村 卓二 小川 智也
 雨宮 可奈 和田 浩典 碓山 直邦
 上田 悠揮 白川 敦史 岡田 雄介
 真田 香澄 中瀬浩二郎 萬代晃一郎
 鈴木 安曇 盛田 篤広 田中 聖人
 宇野 耕治 安田健治朗

京都第二赤十字病院 外科

近藤 裕 谷口 弘毅

京都第二赤十字病院 病理診断科

桂 奏

要旨：症例は29歳女性で、右下腹部痛を主訴に来院した。腹部造影CTで虫垂の腫大や壁肥厚と周囲の脂肪織濃度上昇を認めた。急性虫垂炎として抗生剤投与で保存的加療を行い腹部症状が改善し退院したが、退院後も虫垂の壁肥厚は残存した。大腸内視鏡検査では虫垂開口部から突出した3cm大の先長い粘膜下腫瘍様の隆起を認めた。注腸X線検査でも盲腸内に突出した粘膜下腫瘍様の隆起性病変を確認し、虫垂粘膜下腫瘍による虫垂重積症と診断した。初発時に月経2日目であったことや過去の文献との比較から、虫垂重積症の原因として虫垂子宮内膜症を最も疑い、単孔式腹腔鏡下盲腸切除術を施行した。摘出標本では起始部から先端まで完全に翻転した虫垂を認め、病理組織検査にて虫垂子宮内膜症と確定診断した。

Key words：虫垂子宮内膜症，虫垂重積症，急性虫垂炎

はじめに

子宮内膜症は一般的に子宮、卵巣、および腹膜に存在することが多い。通常と異なる部位に子宮内膜症病巣が存在するものを異所性子宮内膜症と呼ぶ。子宮内膜様組織を腸管に認める病態を腸管子宮内膜症と呼び、子宮内膜症のうち7～37%に認めると報告されている¹⁻⁴⁾。そのうち、虫垂に病変が存在するものを虫垂子宮内膜症と分類する。今回、虫垂子宮内膜症による虫垂重積症を来した症例を経験した。虫垂子宮内膜症は術前診断が困難であり、比較的稀な症例と考えられたので文献的考察を加えて報告する。

I. 症 例

患者：29歳，女性，未婚。

主訴：心窩部痛，右下腹部痛。

既往歴：偽膜性腸炎（17歳）。

現病歴：前日より持続する心窩部痛を認めたため当院を受診した。一旦帰宅したが痛みが右下腹部痛に移行し、翌日に当院へ入院した。

妊娠・出産歴：なし。

月経：30日周期，整。受診日は月経2日目。

入院時現症：身長156cm，体重59kg，体温36.6℃，血圧116/68mmHg，脈拍67回/分。心音・呼吸音異常なし。腹部は平坦軟で，右下腹部に圧痛を認めた。反跳痛は認めなかった。腹部腫瘍は触知しなかった。

入院時血液検査所見（表1）：一般血液および血液生化学検査では炎症の上昇もなく，異常値を認めなかった。腫瘍マーカーは正常範囲内であった。腹部超音波検査所見（図1）：右下腹部に約12mm

表 1 入院時血液検査.

生化学		血算	
TP	6.7g/dl	WBC	9300/ μ l
T-bil	1.0mg/dl	RBC	395 \times 10 ⁴ / μ l
AST	17U/l	Hb	11.9g/dl
ALT	13U/l	Hct	34.4%
LDH	171U/l	Plt	21.8 \times 10 ⁴ / μ l
CPK	96U/l		
Amy	101U/l		
BUN	14.6mg/dl		
Cre	0.72mg/dl	腫瘍マーカー	
Glu	97mg/dl	CA19-9	18U/ml
Na	141mEq/l	CA125	9U/ml
K	4.1mEq/l	CEA	1.1Ng/ml
Cl	108mEq/l		
CRP	0.07mg/dl		

に腫大した虫垂を認めた。また、中心部は高エコー、外周は低エコーを示す target like appearance を認めた。

腹部造影 CT 検査所見 (図 2)：虫垂の腫大、壁肥厚と周囲の脂肪濃度上昇を認めた。虫垂は盲腸内に突出し重積を疑う所見だった。腹水は認めなかった。

以上より、画像的に急性虫垂炎を疑ったが、炎症の上昇・発熱を認めなかったため、緊急手術は行わず抗生剤 (フロモキシセフ 2g/日) の投与で保

存的加療を行った。その後は腹部症状が改善したため第 10 病日に退院した。退院後は腹痛の訴えはなかったが、第 31 病日に行った腹部超音波検査の再検で虫垂の壁肥厚は残存していたため、大腸内視鏡検査を行うこととした。

大腸内視鏡検査所見 (図 3)：虫垂開口部から突出した 3cm 大の先長い粘膜下腫瘍様の隆起を認め、クッションサインは陰性であった。生検結果では Group1 であり悪性所見は認めなかった。

注腸造影検査所見 (図 4)：盲腸内に突出した表面平滑な隆起性病変を認めた。隆起の長径は基部で 16mm、高さ 32mm であり、隆起は頂部にかけて階段状、同心円状に細くなっていた。いわゆる coiled spring sign を呈しており、隆起の形態はあたかもクロワッサンのようであった。

骨盤 MRI 検査所見：垂根部側に根部優位に比較的平滑で内部は均一な壁肥厚を認め、肥厚した根部はわずかに盲腸内に重積様であった。内部に出血を示唆するような所見はなかった。両側卵巣や子宮には異常所見は認めなかった。

以上の検査より、虫垂粘膜下腫瘍による虫垂

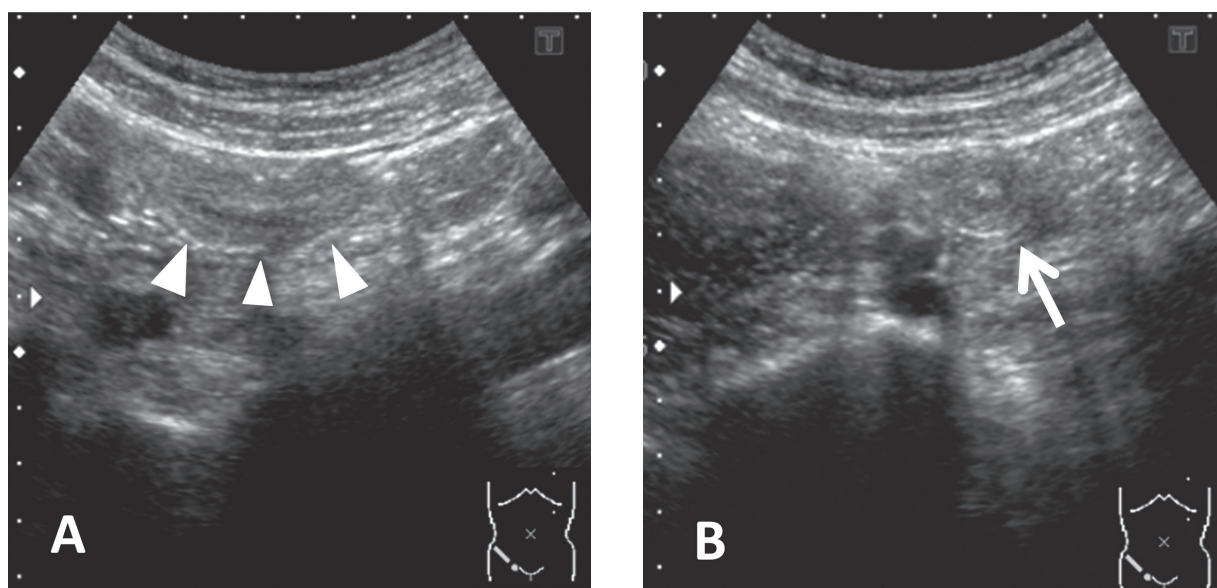


図 1 腹部超音波検査所見

A：径 12mm に腫大した虫垂を認めた (矢頭)。

B：右下腹部に約 12mm の中心部は高エコー、外周は低エコーを示す target like appearance を認めた (矢印)。

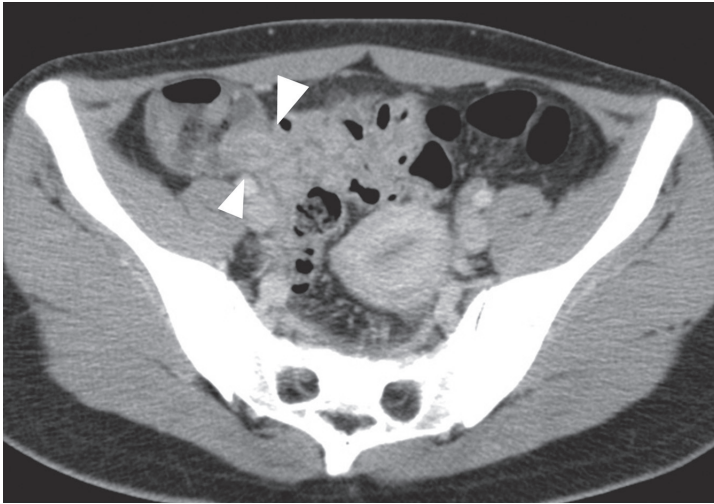


図2 腹部造影CT検査所見

虫垂の腫大と壁肥厚と周囲の脂肪織濃度上昇を認めた。虫垂は盲腸内に突出し重積を疑う所見だった。

重積症と診断した。症状の初発時に月経2日目であったことや過去の文献との比較から、粘膜下腫瘍の原因として虫垂子宮内膜症を最も疑った。今後腹痛を繰り返す可能性があることや悪性所見を完全に否定できないことを考慮し、第124病日に単孔式腹腔鏡下盲腸切除術を施行した。なお、術前の婦人科的診察では子宮・付属器には異常所見はなく、月経困難症や慢性骨盤痛などの子宮内膜症を疑う所見は認めなかった。また、手術当日は月経中ではなかった。

術中所見：腹腔内には小骨盤腔内に少

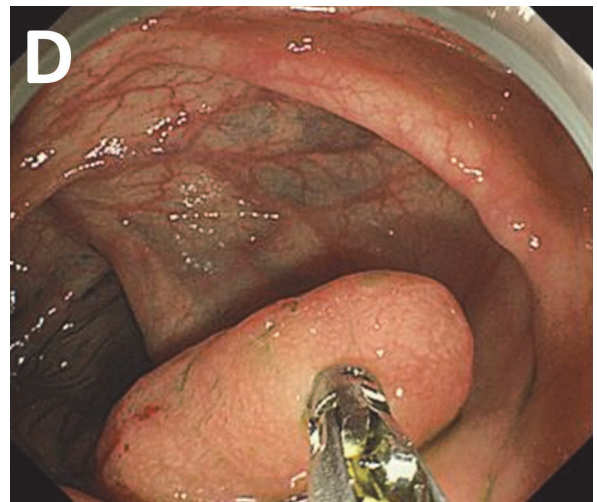
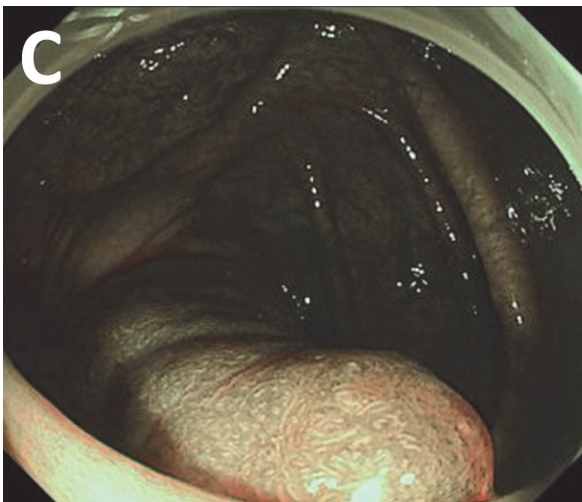
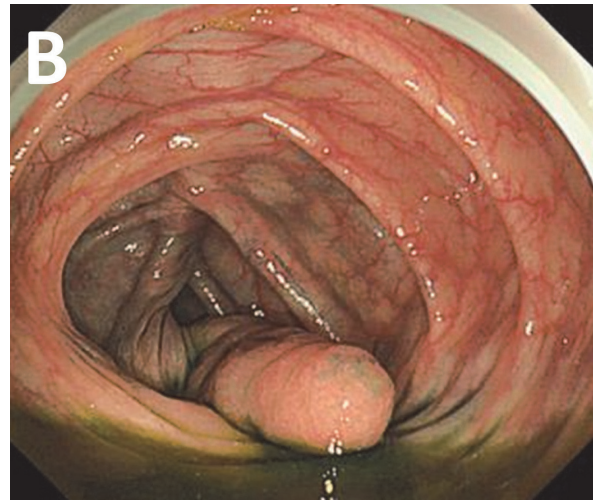
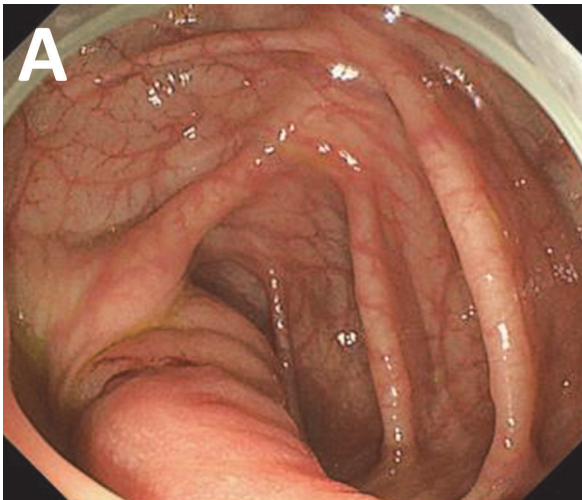


図3 大腸内視鏡検査所見

A：通常観察。

B：インジゴカルミン色素撒布像。虫垂開口部から盲腸内に突出した3cm大の先長い粘膜下隆起を認めた。

C：NBI近接観察。表面はI型及びⅢL型pit様構造が混在するような所見であった。

D：クッションサインは陰性であった。生検結果ではGroup1であった。

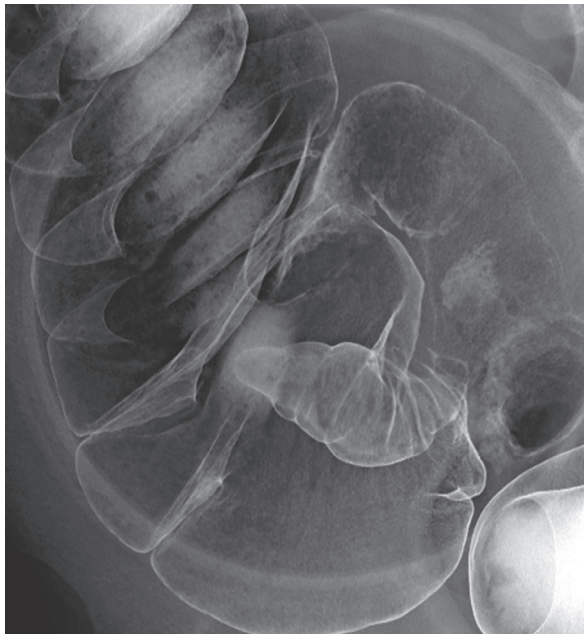


図4 注腸造影検査所見

盲腸内に突出した表面平滑な隆起性病変を認めた。隆起の長径は基部で16mm、高さ32mmであり、隆起は頂部にかけて階段状、同心円状に細くなっていた。いわゆる coiled spring sign を呈しており、隆起の形態はあたかもクロワッサンのようであった。

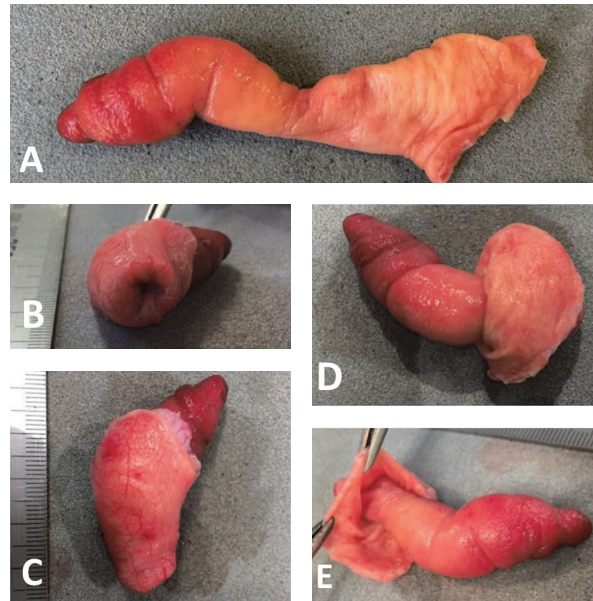


図5 摘出標本肉眼所見

- A：起始部から先端まで完全に翻転した虫垂を認めた。
- B：重積は解除できず、虫垂は内翻していた。
- C：虫垂は盲腸内に引き込まれており、虫垂間膜に覆われている。
- D：注腸造影所見様。
- E：内視鏡所見様。

量の淡血性腹水を認めたが、明らかな出血源や異常腹水、腹膜播種性病変は認めなかった。盲腸の先端には内腔に嵌入する虫垂間膜を認めた。Hutchinson 手技にて重積解除を試みたが解除は困難であり、重積状態のまま盲腸切除術を施行した。また、周囲には子宮内膜症を疑わせる癒着・線維化や blue berry spot は認めなかった。

摘出標本肉眼所見 (図5)：起始部から先端まで完全に翻転した虫垂を認めた。

病理組織学所見 (図6)：翻転した虫垂先端部の漿膜下層から固有筋層深部を主座に子宮内膜組織が散在し、虫垂子宮内膜症と診断した。内膜組織は先端の2cm程度の部分に限局していた。

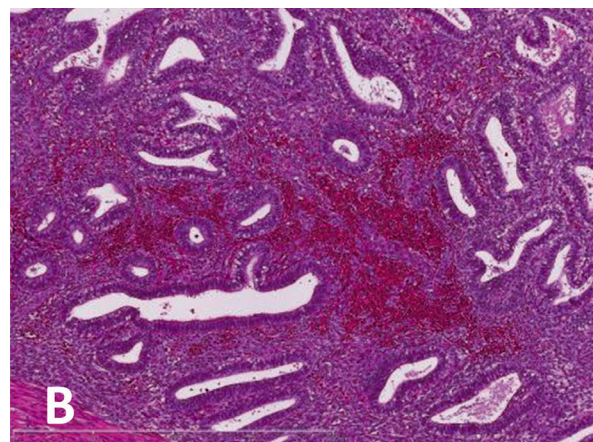
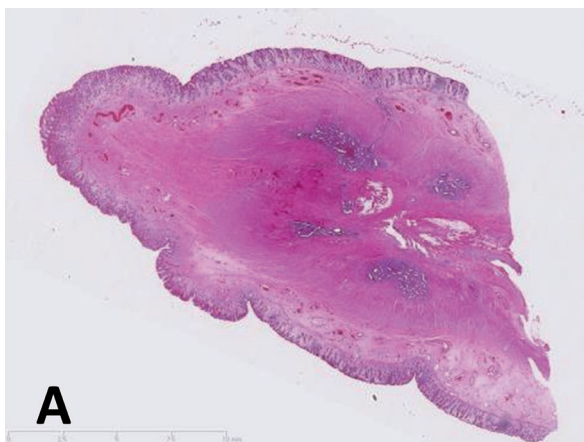


図6 病理組織学所見

- A：HE 染色ルーペ像。虫垂先端部の漿膜下層から固有筋層深部を主座に子宮内膜組織が散在しており、一部で粘膜下層にも及んでいる。
- B：HE 染色中拡大像 (10倍)。内膜間質を背景に内膜腺が見られ、間質には部分的に出血を認める。

Ⅱ. 考 察

子宮内膜症とは、子宮内膜組織が子宮以外に存在する非腫瘍性疾患である。子宮内膜症は異所性の子宮内膜組織が卵巣、卵管、膣などで発生する性器内子宮内膜症と、靱帯、Douglas 窩などで発生する性器外子宮内膜症に分類される¹⁾。性器外子宮内膜症のうち、異所性の子宮内膜組織が腸管壁内で増殖する場合を腸管子宮内膜症とよび、1909年にMeyerにより初めて報告された²⁾。子宮内膜症の病因として、月経血が卵管経由で腹腔内に逆流し、子宮内膜組織が腹腔内に播種し腸管の漿膜側に付着したのち、性周期とともに増殖・脱落を繰り返しながら筋層や粘膜下層に浸潤していくという説が最も有力であるが³⁾、そのほかにも諸説がある。

腸管子宮内膜症はMacafeeらの報告によると子宮内膜症のうち7～37%を占め^{3, 4)}、30～40代の性成熟期女性に好発する。発症部位別としては直腸、S状結腸が72%、直腸膣中隔が14%、小腸が7%、盲腸が4%、虫垂が3%となっている⁶⁻⁸⁾。虫垂子宮内膜症は1860年にVon Rokitsanskyによって最初に報告された⁹⁾。

虫垂子宮内膜症の症状は、急性・慢性虫垂炎と類似した、周期的・慢性的に出現する右下腹部痛や慢性骨盤痛、悪心・嘔吐などの消化器症状といわれている¹⁰⁾。しかし、虫垂子宮内膜症は右付属器に子宮内膜症を認める例が多く¹¹⁾、これらの症状は虫垂子宮内膜症そのものによる症状かは不明である。本症例は虫垂以外に子宮内膜症を疑う所見を認めておらず、右下腹部痛は明らかに虫垂子宮内膜症に起因する症状であると考えられる。本症例の右下腹部痛は、内分泌変化による組織内の出血が虫垂の浮腫と炎症による管腔の閉塞を来すことにより二次的に虫垂炎を引き起こしたことが要因と考えられる¹²⁾。

一方、虫垂重積症が発症する解剖学的要因として、虫垂の発育不全、広い虫垂内腔、虫垂間膜の菲薄化や欠損による固定不良がいられている。本症例では、虫垂先端部に内膜症組織を認めており、虫垂筋層内にある子宮内膜症組織が増殖した時に虫垂の先端が閉塞され、それが先端部となり重積を引き起こしたと考えられる。

子宮内膜症以外に虫垂重積をきたしうる病態生理学的要因としては、異物・便塊・粘液嚢胞・結核性病変・良悪性腫瘍・カルチノイドなどがいられている¹³⁾。これらを術前に鑑別することは困難であるが、本症例では前述のように、症状の初発時に月経2日目であったことや過去の文献との比較から、術前診断として虫垂子宮内膜症を最も疑い、比較的侵襲の少ない手術を選択することができた。

腸管子宮内膜症の治療にはホルモン療法と外科的切除とがある。欧州生殖発生学会の子宮内膜症診療ガイドラインでは、ホルモン療法は疼痛の軽減に有効とされており¹⁴⁾、具体的には、低用量ピルやダナゾール、GnRHアナログを用いた排卵抑制療法がある。一方、腸管子宮内膜症で外科的切除の対象となるのは腸管狭窄・閉塞に至ったもの、穿孔例、ホルモン療法無効例、挙児希望例、悪性腫瘍の除外ができないものである¹⁵⁾。腸管子宮内膜症における悪性化の症例はほとんどないが、子宮内膜症では他の消化管にも存在する可能性もあり、病巣を完全に切除したとしても約30～40%は術後数年以内に再発するとの報告もある。本症例では子宮内膜組織は虫垂の一部にみられるのみであり、外科的に完全に摘除されていると考えられるものの、今後も定期的な経過観察が必要と考えられた。

Ⅲ. 結 語

以上、子宮内膜症による虫垂重積症を経験したので報告した。

開示すべき利益相反はない。

参 考 文 献

- 1) 小平 進. 腸管子宮内膜症 腸管子宮内膜症の病態. 胃と腸 1998; **33**: 1323-1328.
- 2) Meyer R. Über entzündliche heterotope Epithelwucherungen im weiblichen Genitalgebiete ung über eine bis in die Wurzel des Mesocolon ausgedehnte benigne Wucherung des Darmepithels. Virchows Arch Pathol Anat 1909; **195**: 487-537.
- 3) Jubanyok KJ, Comite F. Extrapelvic endometriosis. Obstet Gynecol Clin North Am 1997; **24**: 411-440.
- 4) Macafee CH, Greer HL. Intestinal endometriosis: a report of 29 cases and a survey of the literature. J Obstet

- Gynaecol Br Emp. 1960 ; **67** : 539-555.
- 5) Sampson JA. Peritoneal endometriosis due to menstrual dissemination of endometrial tissue into peritoneal cavity. Am J Obstet Gynecol 1927 ; **14** : 422-425.
 - 6) Mason JC. Surgical significance of endometriosis. Ann Surg 1945 ; **102** : 819.
 - 7) Macafe CHG, Greer HL. Intestinal endometriosis. J Obstet Gynecol 1960 ; **67** : 539-555.
 - 8) 吉積 司, 長谷和生. 子宮内膜症 腸管子宮内膜症. 産婦の実際 2009 ; **58** : 1513-1517.
 - 9) Von Rokitansky C. Uterusdrusen Neubildung in Uterus und Ovarial Sarcomen. Ztschr kk Gesselsch Aerzte Wein 1860 ; **16** : 577-581.
 - 10) Martin LF, Tidman MK, Jamieson MA. Appendiceal intussusception and endometriosis. J Can Assoc Radiol. 1980 ; **31** : 276-277.
 - 11) 加藤達矢, 金野陽輔, 明石大輔, 他. まれな子宮内膜症への対応 11. 虫垂子宮内膜症. 産と婦 2010 ; **77** : 1467-1474.
 - 12) Astroza G, Faundes V, Nanjarí R, et al. Appendiceal endometriosis differentially diagnosed from acute appendicitis. Chin Med J 2010 ; **123** : 1610-1611.
 - 13) Langsam LB, Raj PK, Calang CF: Intussusception of the appendix. NY State J Med 1967 ; **67** : 2625-2629.
 - 14) Dunselman GA, Vermeulen N, Becker C, et al. ESHRE guideline: management of women with endometriosis. Hum Reprod 2014 ; **29** : 400-412.
 - 15) 大谷和広, 清水周次, 飛松正則, 他. イレウス症状にて発症した多発性腸管子宮内膜症の1例. 消外 1995 ; **18** : 639-643.

Appendiceal Intussusception Secondary to Appendiceal Endometriosis: A Case Report

Department of Gastroenterology, Japanese Red Cross Kyoto Daini Hospital

Yuka Azuma, Takuji Kawamura, Tomoya Ogawa,
Kana Amemiya, Hironori Wada, Yuki Ueda,
Naokuni Sakiyama, Atsushi Shirakawa, Yusuke Okada,
Kasumi Sanada, Azumi Suzuki, Kojiro Nakase,
Koichiro Mandai, Atsuhiko Morita, Kiyohito Tanaka,
Koji Uno, Kenjiro Yasuda

Department of Surgery, Japanese Red Cross Kyoto Daini Hospital

Yutaka Kondo, Hiroki Taniguchi

Department of Histopathology and Cytology, Japanese Red Cross Kyoto Daini Hospital

Kanade Katsura

Abstract

A 29-year-old female visited our hospital because of right lower abdominal pain. Abdominal enhanced CT scan revealed that wall thickening of the appendix and local peritonitis. We diagnosed the cause of abdominal pain was acute appendicitis, and treated with antibiotics. The patient was discharged from our hospital because the pain was improved; however, wall thickening of the appendix remained even after the discharge. Colonoscopy revealed an elevated lesion with a length of 3 cm and a diameter of 1 cm, covered by normal mucosa in the cecum. Barium enema revealed that shape of the elevated lesion was like a croissant; therefore, we diagnosed the elevated lesion was intussusception of the appendix. We suspected the intussusception was secondary to appendiceal endometriosis, because the abdominal pain started at the second day of menstruation. Furthermore, the image of the endoscopy and barium enema was resembled past reported cases of appendiceal endometriosis. We performed single-incision laparoscopic cecectomy. Macroscopically, appendix was completely intussuscepted. Histologically, endometrial tissue was present in the appendix.

Key words : appendiceal endometriosis, appendiceal intussusception, acute appendicitis