

福島県立医科大学 学術機関リポジトリ



Title	血清CA19-9が高値であった成人小腸原発消化管重複症の一例
Author(s)	小鹿山, 陽介; 二見, 徹; 草間, 大輔; 齋藤, 敬弘; 大谷, 聡; 伊東, 藤男; 土屋, 貴男
Citation	福島医学雑誌. 74(1): 13-17
Issue Date	2024
URL	http://ir.fmu.ac.jp/dspace/handle/123456789/2261
Rights	© 2024 福島医学会
DOI	10.5387/fmedj.74.1_13
Text Version	publisher

This document is downloaded at: 2024-06-30T16:18:49Z

〔症例報告〕

血清 CA19-9 が高値であった成人小腸原発消化管 重複症の一例

小鹿山陽介, 二見 徹, 草間 大輔, 齋藤 敬弘, 大谷 聡
伊東 藤男, 土屋 貴男

公立岩瀬病院

(受付 2023 年 3 月 15 日 受理 2024 年 2 月 21 日)

A case of adult gastrointestinal duplication with high serum CA19-9

Yosuke Ogayama, Toru Futami, Daisuke Kusama, Takahiro Saito, Satoshi Otani
Fujio Ito and Takao Tsuchiya

Iwase General Hospital

要旨: 症例は 62 歳, 男性。右下腹部痛を主訴に来院した。Computed tomography (以下 CT) 所見で回盲部腫瘍を認めた。術前の血液検査で血清 CA19-9 が 351.5 U/ml と高値を示し, 悪性腫瘍を疑い腹腔鏡下手術に臨んだ。腫瘍は虫垂に癒着しており, 虫垂と共に摘出した。摘出後回腸末端から全小腸を確認すると Treitz 靱帯から約 200 cm の位置から起始している約 10 cm の重複腸管を認め, 回腸部分切除を行なった。病理検査の結果, 管状部分は腸管の全層構造を有する小腸組織で構成され, 先に摘出した腫瘍との間に連続性が確認された。管状かつ球状嚢胞の形態を呈する消化管重複症と診断されたが悪性所見は認められなかった。成人発見の重複腸管は比較的稀で, 本邦の報告では術前腫瘍マーカー高値を示した症例の多くは悪性腫瘍であったが, 本症例では当てはまらず, 形態と合わせて非常に稀な症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

索引用語: 消化管重複症, CA19-9, 回腸重複

Abstract: A 62-year-old man presented with pain in his lower right abdomen. Computed tomography (CT) revealed a cystic lesion in the ileocecal region. A preoperative blood examination indicated an elevated level of serum CA19-9 (351.5 U/mL). The possibility of a malignant tumor in the ileocecal region prompted laparoscopic surgery, which confirmed the presence of a cyst attached to the appendix and a 10 cm ileal duplication located 200 cm from the Treitz ligament. Subsequently, a partial resection of the ileum was performed. Pathological examination of the specimen revealed that the ileal duplication consisted of ileal tissue, exhibiting a full-thickness structure resembling the intestinal tract. Moreover, a connection was established between the cyst and the ileal duplication, confirming their continuity. The patient was diagnosed with a tubular and cystic gastrointestinal duplication without any malignant characteristics. Tubular and cystic gastrointestinal duplications are rare conditions, often accompanied by elevated preoperative tumor markers. The absence of malignancy in such cases is even rarer, prompting this case report alongside a comprehensive review of the existing literature.

Key words: gastrointestinal duplication, CA19-9, Ileal duplication

はじめに

消化管重複症は剖検例の0.02%に認められる稀な先天性疾患であり、その重複部位は全消化管に見られるものの回盲部を含む小腸が53%と最も多い^{1,2)}。ほとんどは小児期に発見され成人での発見は比較的稀である²⁾。消化管重複症に悪性腫瘍を合併することは稀であるが、重複腸管自体が前癌病変であるとする意見や血液検査で血清CA19-9高値を示した場合は高率に悪性所見を合併するとの報告もある³⁾。

今回われわれは画像検査で回盲部腫瘍を疑われ、術前に血清CA19-9が高値であった成人小腸原発消化管重複症を経験したので報告する。

症 例

症例：62歳，男性。

主訴：右下腹部痛。

既往歴：高血圧，高尿酸血症，バセドウ病。

現病歴：食後に右下腹部痛が出現。4日後に背部まで疼痛が広がり，発熱を認めたため当院救急外来受診し，精査加療目的に入院した。その後の検査で回盲部の腫瘍を指摘され外科紹介となった。

身体所見：身長170 cm，体重68 kg，血圧136/73 mmHg，脈拍79/分整，体温36.1°C，SpO₂98% (room air)，呼吸数16/分，腹部軟，平坦，右下腹部に圧痛あり。

血液検査所見：血清CA19-9 351.5 U/mlと腫瘍マーカーの上昇を認めたが，WBC 4,900/μL，CRP 0.14 mg/dLと炎症反応の上昇はなく，その他の異常所見も認めなかった。

腹部CT所見：回盲部付近に造影効果を伴う壁肥厚を有する単房性の腫瘍を認め，回腸末端からの連

続性が疑われた(図1)。

下部消化管内視鏡：回腸末端，虫垂入口部，盲腸に腫瘍など異常所見を認めなかった。

手術所見：全身麻酔下に腹腔鏡にて腹腔内を観察すると，虫垂と癒着した腫瘍を認めた。虫垂原発の腫瘍を疑ったため，悪性腫瘍の可能性も考慮し，嚢胞を損傷しないよう注意を払った。腫瘍周囲の癒着を剥離した後に腫瘍は虫垂と共に切除した。嚢胞内溶液の術中迅速細胞診では悪性を疑う所見を認めなかった。切除後に回腸末端から全小腸を確認したところ，Treitz靱帯から約200 cmの位置から起始している約10 cmの重複腸管を認めた。重複腸管は腹腔内腫瘍と連続していたものが剥離操作の過程で離断されたものと思われた。小腸と重複腸管は間膜を介して連続していたため，臍部に小開腹において小腸を腹腔外に引き出し，重複腸管を含めた小腸を切除した。

摘出標本所見：重複腸管への入口部は不明であった。腫瘍と重複腸管は術中に切離されていたが，連続性が疑われた(図2)。腫瘍内は淡黄色の液体が充満しており，液体中のCA19-9は>1,200.0 U/mlと高値であった。

病理組織学的所見：腫瘍病変周囲脂肪織には脂肪壊死，多数の泡沫細胞と少数の多核巨細胞，リンパ球，形質細胞および好酸球の浸潤，ヘモジデリン沈着がみられ，黄色肉芽腫性炎の所見を認めた。重複腸管側は腸管の全層構造を有する小腸組織で構成されていた。腫瘍病変も同様な全層構造を有しており，連続性が確認された。腫瘍はCA19-9免疫染色で粘膜までが陽性であり，CA19-9の分泌が示唆された。(図3)。

病理組織診断では明らか悪性所見を認めなかつ

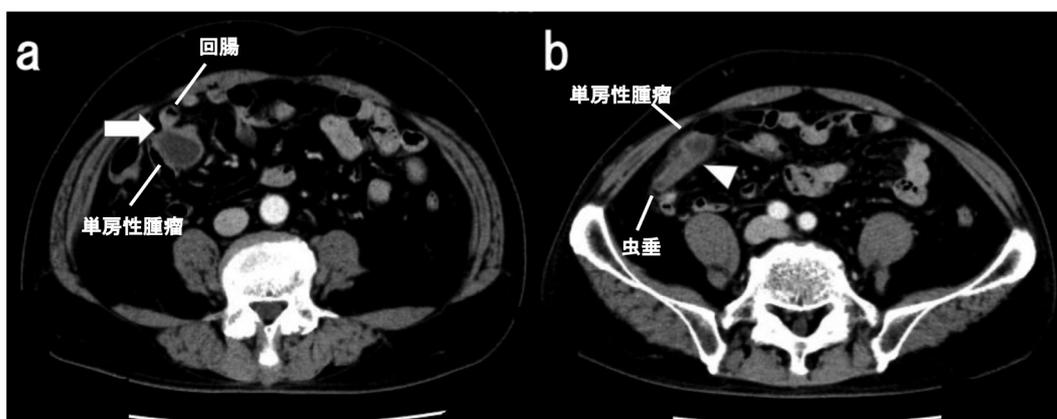


図1. 腹部造影CT検査：造影効果を伴う単房性腫瘍。a (冠状断)：回腸との連続(矢印)が疑われた。b (冠状断)：虫垂との癒着(矢頭)が疑われた。

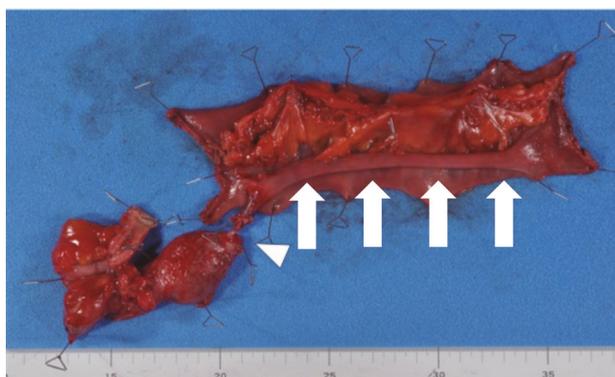


図 2. Treitz 靱帯から約 200 cm の位置から起始している約 10 cm の重複腸管 (矢印)。嚢胞と管状腸管の間に連続性が疑われた (矢頭)。

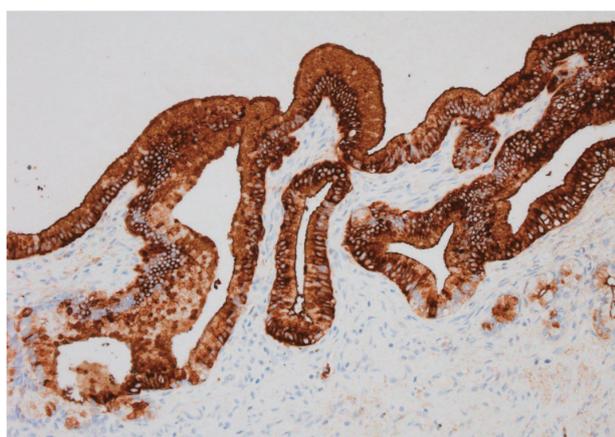


図 3. CA19-9 免疫染色, ×10 嚢胞内粘膜が陽性を示した。

た。

術後経過：術後経過良好で第 14 病日に退院。退院後の外来診察で血清 CA19-9 値の正常化を確認した。

考 察

消化管重複症 (Duplication of the alimentary tract) は 1940 年に Ladd and Gross らが症候群として提唱したもので、① 平滑筋層により包まれ、② 内面が消化管上皮で覆われ、③ 隣接した正常消化管と血流を共有するものと定義した。

長嶺らの報告では男性に 54% と多く、15 歳未満が 72% とほとんどが小児期に発見される²⁾。発生部位は食道から直腸に至る全消化管にみられ、回腸末端 (回盲弁から 20 cm 以内とする。以下同様)、回盲部発生が 35% と最も多く、次いで直腸が 22.8%、小腸が 18.3% とこれらで 76% を占めるとしている。形態は球形嚢胞状、管状の二つに大別され、管状か

つ球形を有するものは 180 例の報告のうち一例のみであった。また、小腸に発生するものは球形が 60.6% を占めているとしている。隣接消化管との交通は管状では 85% にみられたが、球状では 4.7% にとどまっているとしている²⁾。

池田らは消化管重複症と消化管嚢腫の区別が曖昧となっている背景から、Ladd らの定義を元に、組織学的に隣接消化管と重複腸管の筋層を共有するものを非分離型とし、筋層を共有しないものを分離型と分類した。重複腸管の起始部は隣接消化管の腸間膜側に多く、消化管と密に接し、同一血管から栄養されているとしている⁴⁾。

須磨崎らの報告では 1991 年から 2014 年 3 月までの間の成人の回腸・空腸発生の消化管重複症の症例報告 50 例では 38 例が腹痛を主訴にしており、10 例 (20%) は重複腸管の穿孔による腹膜炎であり、7 例 (14%) に消化管出血がみられたとしている。術前診断は 10 例 (20%) で可能であったが、8 例はイレウス、4 例は Meckel 憩室と診断されていた⁵⁾。

自験例では腹痛を契機に発見されており、術前診断は腹腔内腫瘍であった。CT 検査では球状の重複腸管に特徴的な所見である造影効果のある厚い壁を有する単房性の嚢胞性病変がみられ、虫垂粘液種など回盲部周辺の病変を想定し手術に臨んだ。実際の重複腸管は Treitz 靱帯から約 200 cm の位置から起始しており、約 10 cm の管状と、そこから連続した嚢胞部分を呈していた。重複腸管の管状部分は小腸の腸管膜付近から起始し、腸間膜から伸びる血管に栄養されていたが、嚢胞部分の支配血管は明らかではなかった。

病理組織診断では管状部分は粘膜、粘膜下層、固有筋層を含む腸管の全層構造を有する小腸組織で構成され、嚢胞部分はびらんにより一部上皮成分は失われていたが、粘膜筋板や固有筋層など腸管構造を呈しており、長嶺らの報告した管状かつ球状嚢胞の形態であった。

嚢胞内は黄色透明な液体が充満しており、細胞診で異形細胞を認めなかったが、CA19-9 >1,200 U/mL と高値であった。嚢胞内上皮の免疫染色で CA19-9 陽性であり、上皮細胞から分泌されたものと判断した。血液検査でも術前から CA19-9 は 351.5 U/ml と高値がみられた。

医学中央雑誌により「回腸重複 CA19-9」「重複腸管 CA19-9」「消化管重複 CA19-9」をそれぞれキーワードにして検索したところ、8 例の報告が見つ

表1. 血清 CA19-9 高値であった消化管重複症の本邦報告例の集計

著者	重複消化管の形状	発生部位	腫瘍マーカー CA19-9 (U/ml)	腫瘍マーカー CEA (ng/ml)	組織型
中村 ³	球形嚢胞状	回腸	1146.8	12.8	腺癌
田子 ⁴	球形嚢胞状	回腸	65.3	6.4	粘液嚢胞腺腫 腹膜偽粘液種
桐山 ⁶	球形嚢胞状	胃	367.8	1.9	嚢胞
大城 ⁷	球形嚢胞状	回腸	115	ND	腺癌
島田 ⁸	球形嚢胞状	空腸	1360	13.4	腺癌
久保 ⁹	球形嚢胞状	回腸	ND	ND	腺癌
松下 ¹⁰	管状	S状結腸	72.7	9.7	腺癌
本症例	管状かつ球形嚢胞状	回腸	351.5	1.0	嚢胞

り、血清 CA19-9 高値を呈した重複腸管は7例であった。形態は嚢胞が6例と多かった。発生部位は小腸が5例と一番多く、S状結腸と胃がそれぞれ1例であった。胃以外の症例の5例は重複腸管原発の腺癌であり、粘液嚢胞腺腫の1例も穿破による腹膜偽粘液腫を発症した。また、血清 CA19-9 ではないが、嚢胞内容液中の CA19-9 高値を呈した症例が1例あった。これも胃から発生した症例であり、悪性所見はなかった^{3,4,6-10)} (表1)。

中村らの報告では重複腸管に悪性腫瘍を合併した例は1977～2014年の間で16例に留まり、その内の12例が腺癌であった。重複腸管由来の悪性腫瘍は非常に稀であると考え³⁾。

しかし今回検索した限り、本邦で報告された小腸原発消化管重複症で血清 CA19-9 高値を示した症例の5例中4例は悪性腫瘍を合併していた。本症例でも悪性腫瘍の可能性を考慮し、腹腔鏡下での手術の際に嚢胞を損傷しないよう注意を払った。術中迅速病理検査にて悪性を疑う所見がなく、嚢胞内の粘膜性病変も認めなかったため、小腸部分切除のみで手術を終了した。術後の病理組織診断でも悪性所見は認めなかった。

血清 CA19-9 が高値を示す原因として機序は明らかではないが、嚢胞内の CA19-9 が濃縮し、内圧の上昇によって血中に過剰に分泌される可能性を示唆する報告があり、本症例も上皮細胞から分泌された CA19-9 が腫瘍内で濃縮して血中に過剰に分泌された可能性がある¹¹⁾。腫瘍内溶液が濃縮する要因としては嚢胞の形態を呈する重複腸管は隣接消化管との交通がないことが多い点が挙げられる。本症例は前述の通り管状かつ嚢胞の形態を呈し、隣接消化管との交通を認めていたが、管状と嚢胞の間には交通がなく、内溶液が濃縮する素因があったと考えられた。

症例報告を振り返ると、小腸原発消化管重複症で血清 CA19-9 高値を示した症例では悪性腫瘍の可能

性が高く注意が必要である。本症例では悪性腫瘍の合併を認めなかったが、術前に血清 CA19-9 高値を示すような重複腸管の場合には、悪性腫瘍合併を考慮し腹腔内の詳細な検索を行い、術中病理検査で悪性が示唆された場合には腸間膜リンパ節郭清を伴う腸管切除を行う必要があると考えられた。

結 語

術前血清 CA19-9 高値を呈した成人消化管重複症の一例を経験した。成人消化管重複症において、血清 CA19-9 高値を示す場合は悪性腫瘍合併の可能性が高いが、嚢胞より CA19-9 が分泌され良性疾病でも血清 CA19-9 高値を示す事がある。成人消化管重複症で血清 CA19-9 高値症例の手術においては、悪性腫瘍合併も考慮した術式の検討が必要である。

文 献

1. 小山良太, 河島秀昭, 吉田 信, 他. 腹腔鏡補助下に切除した成人上行結腸重複腸管の1例. 北海道勤医協医誌, **35**: 31-35, 2013.
2. 長嶺信夫, 宮城 靖, 遠藤 巖, 他. 消化管重複症-症例報告ならびに本邦文献報告180例の統計的観察. 外科診療, **19**(4): 466-471, 1977.
3. 中村有貴, 瀧藤克也, 水本有紀, 他. 粘膜下腫瘍形態を呈した重複腸管由来小腸癌の1例. 日消外会誌, **49**(5): 447-454, 2016.
4. 田子友哉, 勝又健次, 榎本将也, 他. 回腸重複腸管由来の粘液嚢胞腺腫穿破による腹膜偽粘液腫の1例. 日消外会誌, **51**(7): 488-497, 2018.
5. 須磨崎真, 磯谷正敏, 原田 徹, 他. 成人小腸重複腸管の1例. 日臨外会誌, **76**(1): 58-62, 2015.
6. 桐山茂久, 谷 眞至, 勝田将裕, 他. 線毛円柱上皮よりなる胃重複症の1例. 日臨外会誌, **68**(1): 58-61, 2007.
7. 大城幸雄, 大河内信弘, 永田千草, 他. 終末回腸重複腸管に発生した腺癌の1切除例. 日消外会誌, **42**(2): 215-220, 2009.

8. 島田 守, 辻 慶久, 山本紀彦, 他. 空腸重複腸管内に腺癌の発生した 1 例. 手術, **57**(5) : 651-653, 2003.
9. 久保拓之, 小野一郎, 高尾茉希, 他. 術前に卵巣癌との鑑別が困難であった回盲部腸管重複症に発生した腺癌の 1 例. 東京産婦会誌, **65**(2) : 207-211, 2016.
10. 松下啓二, 島田 良, 荻原迪彦, 他. S 状結腸重複症に発生した結腸癌の 1 例. 信州医誌, **50**(2) : 77-81, 2002.
11. 松澤克典, 板橋浩一, 松澤信五, 他. 血中 CA19-9 及び囊胞液中の CA19-9, CEA が異常高値を示した巨大肝囊胞の 1 例. 日消外会誌, **32**(10) : 2375-2379, 1999.