

症 例

Meckel 憩室内に発生した小腸カルチノイドの一例

住吉秀太郎^{1,2)}、原田恭一^{1,2)}、永瀬崇¹⁾、竹本健一^{1,2)}、
越野勝博¹⁾、當麻敦史^{1,2)}、落合登志哉^{1,2)}、大辻英吾²⁾

- 1) 京都府立医科大学附属北部医療センター 外科
- 2) 京都府立医科大学 消化器外科

A Case of Small Intestinal Carcinoid Occurring in Meckel's Diverticulum

Shutaro Sumiyoshi^{1,2)}, Kyoichi Harada^{1,2)}, Takashi Nagase¹⁾,
Kenichi Takemoto^{1,2)}, Katsuhiko Koshino¹⁾, Atsushi Toma^{1,2)},
Toshiya Ochiai^{1,2)} and Eigo Otsuji²⁾.

- 1) Department of Surgery, North Medical Center
Kyoto Prefectural University of Medicine
- 2) Division of Digestive Surgery, Department of Surgery,
Kyoto Prefectural University of Medicine

要 旨

症例は69歳男性。某年1月に右下腹部痛を主訴に当院救急を受診し感染性腸炎の診断で入院となった。精査で炎症を伴う小腸腫瘍を指摘され、異所性腓による腓炎の診断で腹腔鏡補助下小腸部分切除術を施行した。術中、回腸末端から55cm口側の回腸漿膜下に突出した腫瘍を認めた。病理組織学的検査の結果、Meckel 憩室内カルチノイド (NET G1) と診断した。小腸腫瘍はMeckel 憩室も鑑別にあがるが、今回我々はMeckel 憩室内カルチノイドを合併する稀な症例を経験したので報告する。

キーワード：小腸カルチノイド、Meckel 憩室、小腸腫瘍

Abstract

The case was a 69-year-old man. In January 2019, he was admitted to our hospital for complaints of right lower quadrant abdominal pain and was hospitalized with a diagnosis of

infectious enteritis. The small intestine was pointed out by preoperative examination, and partial resection of the small intestine was performed by a laparoscopically, electively with the diagnosis of pancreatitis due to ectopic pancreas. During the operation, a tumor was combined in the serosa of ileum 55 cm orally from the terminal ileum. By the histopathological examination it was diagnosed as a Meckel diverticulum carcinoid. Surgical resection of symptomatic Meckel's diverticulum should be considered in consideration of the possibility of malignant tumors.

Key word: small intestine carcinoid, Meckel's diverticulum, small intestine tumor

I. 緒言

小腸カルチノイドは小腸原発悪性腫瘍の1.7%で、消化管カルチノイドにおける臓器別発生頻度でも2.2%と稀な疾患である。一方、Meckel憩室は全剖検例の2 - 3%に認められる消化管奇形で、Meckel憩室内に腫瘍が発生する頻度は3.2%とされているが、カルチノイドに関しては少数報告に留まる。今回我々は、Meckel憩室内に発生した小腸カルチノイドの1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

II. 症例

患者：69歳、男性

主訴：右下腹部痛

既往歴：高血圧症

現病歴：2019年1月、右下腹部痛が出現し、症状改善なく翌日当院救急受診。感染性腸炎の診断で入院となった。精査で異所性膵による膵炎が疑われた。保存的加療で症状改善し第14病日に退院。2019年3月、待機的手術目的に当科紹介となった。

入院時現症：身長 166.7cm、体重

70.2 kg、体温 37.3℃、脈拍 65 回 / 分、血圧 123/74 mmHg、SpO₂ 97 % (room air)、意識清明、貧血なし、黄疸なし。右下腹部に圧痛を認めたが、腹膜刺激兆候は認めなかった。入院時血液検査所見：WBC 11,500 /mm³、CRP 24.1 mg/dL と高度の炎症所見を認めたが、その他の血液生化学検査では異常は認めなかった。



図1. 腹部造影 CT 検査。回腸に消化管外へ突出する壁肥厚と造影効果を伴う嚢胞状構造を認めた (矢印)。

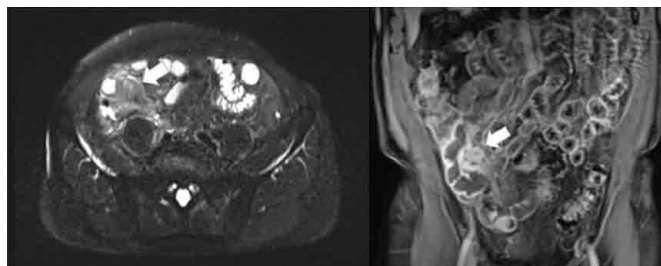


図2. MRI 検査。回腸の腸間膜側に内部が充実性に造影される軟部陰影を認めた (矢印)。

腹部造影 CT 検査：回腸に消化管外へ突出する壁肥厚と造影効果を伴う嚢胞状構造を認めた。周囲に膿瘍形成を認め、穿孔も疑われた。〈図 1〉

MRI 検査：回腸の腸間膜側に内部が充実性に造影される 24mm × 14mm の軟部陰影を認めた。〈図 2〉

CT 検査では、メッケル憩室もしくは小腸憩室の炎症および穿破、腹腔内膿瘍形成と考えられた。MRI 検査では充実性腫瘤が疑われ、長細い形態で腸間膜側に位置し、炎症合併していることから異所性膵による膵炎が第一に疑われた。小腸腫瘍（回腸異所性膵）の診断で、待機的に腹腔鏡補助下回腸部分切除術を施行した。

手術所見：回腸末端から 55cm 口側の回腸漿膜下に突出した腫瘍を認め、5 - 10cm の margin を確保し切除した。異所性膵を疑ったためリンパ節郭清は行わず部分切除のみとした。虫垂は 2 次性に炎症の兆候があったため将来的な手術リスクも加味して同時に切除した。

【手術時間】 87 分 【出血】 53g

〈図 3〉

病理組織学的所見：漿膜下に突出する Meckel 憩室と、憩室の開口部に 5mm 大の腫瘤性病変を認めた。腫瘤は、免疫染色で CD56 (+)、CGA (+)、synaptophysin (+) を認め Meckel 憩室内カルチノイドと診断した。分裂像 < 2/10 HPF、ki-67 index ≤ 2% で G1 相当であった。固有筋層への進展なし。脈管侵襲なく、切除断端も陰性であった。異所性膵組織や胃粘膜は認めなかった。

〈図 4〉

経過：術後経過は良好で、術後第 7 病日に退院した。術後 9 カ月現在、無再発生存中。

Ⅲ. 考 察

消化器に発生する神経内分泌腫瘍 (NEN)



図 3. 手術所見。回腸末端から 55cm 口側の漿膜に突出を認めた。

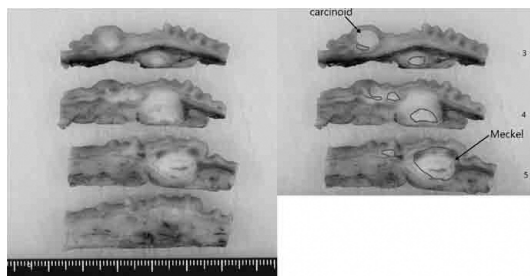


図 4. 病理組織学的所見。漿膜下に突出する Meckel 憩室と、開口部に 5mm 大の NET G1 相当のカルチノイドを認めた。

は、年間発症率が人口 10 万人に 3 - 5 人の比較的稀な腫瘍である¹⁾。消化管 NEN は原腸性臓器に散在する神経内分泌細胞を起源とし、粘膜深層より徐々に粘膜下層へと発育する上皮性の腫瘍である。その発生部位から前腸系 (食道・胃・十二指腸)、中腸系 (空腸・回腸・虫垂)、後腸系 (結腸・直腸) に分けられる。欧米では全 NEN の 1/3 を小腸 NEN が占めるのに対し、本邦での消化管 NEN の好発部位は直腸 (55.7%)、十二指腸 (16.7%)、胃 (15.1%) であり、小腸 NEN の頻度は空腸 (1.6%)、回腸 (0.6%) と稀な疾患である²⁾。そのため本邦での小腸 NEN の

報告者	年	年齢・性別	症状	術前診断	術式	後治療	予後
安藤	1991	86歳 女	下腹部痛 嘔吐	腸閉塞	Meckel憩室切除	なし	1年9カ月再発 なし
浮草	1997	73歳 男	腹部膨満感	結腸癌 腸閉塞	結腸右半・小腸切除	なし	術後68日目 死亡
森	2005	54歳 男	下腹部痛 黄疸	回盲部膿瘍	虫垂切除 洗浄ドレナージ	なし	6カ月再発 なし
坂本	2016	67歳 男	発熱、腹痛 黄疸	胆管癌 回盲部膿瘍	臍頭十二指腸切除 小腸楔状切除	なし	10カ月再発 なし
坂口	2016	84歳 女	腹痛 体重減少	腸重積	腹腔鏡補助下小腸部分切除	なし	6カ月再発 なし
自験例	2019	80歳 男	右下腹部痛	異所性脾炎	腹腔鏡補助下小腸部分切除 虫垂切除	なし	9ヶ月再発 なし

表1. Meckel 憩室内カルチノイドの本邦報告例

臨床像に関する検討においては「カルチノイド」という名称を用いた旧分類での報告が現在も散見される³⁾。小腸 NEN の症状は腸間膜の線維化による間欠的な血流障害などによる腹痛が多く、肝転移を伴う病変の 20 - 30% で皮膚紅潮や下痢、低血圧などのいわゆるカルチノイド症候群を引き起こすとされている。小腸 NEN のほとんどが NET G1・G2 であるが、リンパ節転移や遠隔転移を来す頻度が高い^{4) - 6)}。粘膜下浸潤までの 94 例の検討では、腫瘍径 5mm 以下の 17.2%、1cm 以下の 30.2%、2cm 超では 53.3% に転移が認められている⁷⁾。手術適応は根治切除可能な局所病変であり、術式は小腸部分切除 + 腸間膜リンパ節郭清を推奨されているが、至適範囲は不明なままである⁸⁾。予後に関する報告例は少ないが、遠隔転移がなく適切な根治的手術が行われた場合の 5 年生存率は 67.6% と比較的良好とされている⁹⁾。Rindi ら¹⁰⁾ は、腫瘍径 (> 10mm)、深達度 (SM 以深)、リンパ節・遠隔転移が多いほど悪性度が高いと報告している。治癒切除不能症例では、抗腫瘍薬を中心とした集学的治療の適応となる⁸⁾。

Meckel 憩室は全剖検例の 2 - 3% に認められる消化管奇形である¹¹⁾。固有筋層を有

する真性憩室であり、存在部位は年齢により異なるが回腸末端から 100cm までの回腸の腸間膜対側に発生する¹²⁾。病理学所見では 20 - 30% に胃粘膜や脾組織などの異所性組織を認める¹³⁾。Meckel 憩室の大部分は無症状で経過するため、臨床的に問題となることは少ないが、約 4% 程度でイレウス・憩室炎・出血・穿孔などをきたし、外科的治療を要する症例も存在すると推測されている¹⁴⁾。Meckel 憩室内腫瘍は症候性 Meckel 憩室の 3.2% に認め、発生した腫瘍の約 75% は悪性腫瘍とされている。その内訳は肉腫 44%、カルチノイド 36%、癌腫 20% であった¹⁵⁾。

自験例のように Meckel 憩室内にカルチノイドが発生した症例は、医学中央雑誌 (1983 年 - 2020 年 2 月) で「メッケル憩室」「カルチノイド」をキーワードに検索したところ、会議録を除いて、5 例のみであった (表 1)^{16) - 20)}。自験例同様に術前診断がついていた症例はなく、いずれの症例も局所切除のみでリンパ節郭清はされていないが、再発例や根治手術の報告はない。Dogeas ら²¹⁾ はメッケル憩室内カルチノイドの報告 280 例をまとめ、平均年齢 64.0 歳、男性が 73.9% を占め、局所のリンパ節の評価が可能であった 87 例

のうち39例(44.8%)でリンパ節転移を認め、16例(6.7%)に遠隔転移を認めたと報告している。予後に関しては、1年生存率が83%、3年生存率が78%、5年生存率が42%であった。またNiesら²²⁾はメッケル憩室内カルチノイドの報告106例をまとめ、詳細のわかる90例を検討し、58例が無症状で、14例が腫瘍に関係ない憩室の症状、18例は腫瘍の症状であった。18例の内訳は、カルチノイド症候群が11例、潰瘍からの出血が2例、潰瘍症状1例、穿孔1例、腸閉塞1例、血管変化に伴う小腸壊死1例、腹膜播種1例であった。自験例はカルチノイドがMeckel憩室の開口部に発生したことにより閉塞し憩室炎を起こしたと考えられ、腫瘍に関連した憩室の症状であった。ほか本邦の症例を検討すると、無症状2例、腸閉塞2例(うち1例は腸重積)、穿孔1例であった^{16)・20)}。Meckel憩室内カルチノイドは早期に転移を起こすため相対的に活動性の高い腫瘍であり、腸間膜リンパ節切除も含めた外科的切除が必要で、これはMeckel憩室に関連しない小腸NENの臨床像とも相違ない結果であった。本症例においては、腫瘍径が5mmであり固有筋層への進展や脈管侵襲なく、切除断端も陰性であることから経過観察としており、術後9ヶ月での再発は認めていない。有症状のMeckel憩室においては悪性腫瘍の合併の可能性を考慮し外科的切除を検討する必要がある。

IV. 結 語

Meckel憩室内に発生した小腸カルチノイドの一例を経験した。

なお本論文の要旨は、第81回日本臨床外科学会(2019年、高知)にて発表した。

開示すべき潜在的利益相反状態はない。

V. 参考文献

- 1) Ito T, Igarashi H, Nakamura K, et al: Epidemiological trends of pancreatic and gastrointestinal neuroendocrine tumors in Japan: a nationwide survey analysis. *J Gastroenterol* 50: 58-64, 2015.
- 2) Ito T, Sasano H, Tanaka M, et al: Epidemiological study of gastroenteropancreatic neuroendocrine tumors in Japan. *J Gastroenterol* 45: 234-243, 2010.
- 3) 森山智彦, 江崎幹宏, 綾部俊一郎, 他: 十二指腸・小腸内分泌細胞腫瘍(カルチノイド)の臨床病理学的特徴. *胃と腸* 48: 993 - 1003, 2013.
- 4) Boudreaux JP, Klimstra DS, Hassan MM, et al: The NANETS Consensus Guideline for the Diagnosis and Management of Neuroendocrine Tumors: well-Differentiated Neuroendocrine Tumors of the Jejunum, Ileum, Appendix, and Cecum. *Pancreas* 39: 753-766, 2010.
- 5) Niederle B, Pape UF, Costa F, et al: ENETS Consensus Guidelines Update for Neuroendocrine Neoplasms of the Jejunum and Ileum. *Neuroendocrinology* 103(2): 125-138, 2016.
- 6) ENETS Consensus Guidelines for Standard of Care in Neuroendocrine Tumours: Surgery for Small Intestinal and Pancreatic Neuroendocrine Tumours. *Neuroendocrinology* 105(3): 255-265, 2017.
- 7) Soga J. Early-stage carcinoids of the gastrointestinal tract: an analysis of 1914 reported cases. *Cancer* 103(8): 1587-1595, 2005
- 8) 日本神経内分泌腫瘍研究会(JNET) 膵消化管神経内分泌腫瘍診療ガイドライ

- ン作成委員会：膵・消化管内分泌腫瘍 (NET) 診療ガイドライン。【第2版】。金原出版，東京，2019。
- 9) 曾我淳：カルチノイドおよび類縁の内分泌癌— 本邦症例と外国症例の比較 —。日臨外会誌 64：2953 - 2966, 2003.
 - 10) Rindi G, Kloppel G, Couvelard A, et al : Nomenclature and classification of neuroendocrine neoplasms of the digestive system. Bosman FT, Carnerio F, Hruban RH (eds), the WHO Classification Tumours of the Digestive Systems, 4th ed., IARC, Lyon, 13-14, 2010.
 - 11) 小高哲郎，金森豊：Meckel 憩室。浅香正博 / 編，別冊日本臨牀新領域別症候群 消化管症候群 (下)，日本臨牀社，大阪，529 - 533, 2009.
 - 12) Yahouchy EK, Marano AF, Etienne JCF, et al : Meckel' s diverticulum. Am Coll Surg 1992; 658-662, 2001.
 - 13) Yamaguchi M, Takeuchi S, Awazu S : Meckel' s diverticulum. Investigation of 600 patients in Japanese literature. Am J Surg 136: 247-249, 1978.
 - 14) 佃和憲，中原早紀，高木章司他：当院における症候性 Meckel 憩室に対する手術症例の検討。日臨外会誌 70：1931 - 1935, 2009.
 - 15) Weinstein EC. Meckel' s diverticulum. J Am Geriatr Soc. 1965;13(10):903-7.
 - 16) 安藤浩，芹沢清人，小坂昭夫：Meckel 憩室カルチノイドに乳癌を伴った1例。日臨外会誌 52：1842 - 845, 1991.
 - 17) 浮草実，山本俊二，芹沢清人，他：結腸癌に併存したメッケル憩室カルチノイドの1例臨外 52：957 - 960, 1997.
 - 18) 森匡史，水黒知行，小杉厚，他：Meckel 憩室原発高分化神経内分泌癌 (悪性カルチノイド) の1例。乙訓医会集録 14：15 - 19, 2005.
 - 19) 坂本沙織，三野和宏，川俣太，他：Meckel 憩室内に発生したカルチノイドの1例。日臨外会誌 77：839 - 843, 2016.
 - 20) 坂口聡，堂西宏紀，中井博章，他：メッケル憩室カルチノイドが先進部となった成人腸重積の1例。和歌山医学 68：64 - 67, 2017.
 - 21) Dogeas E, Magallanes M, Porembka MR, et al : Neuroendocrine Tumors in Meckel' s Diverticulum: Recommendation for Lymphadenectomy Regardless of Tumor Size Based on the NCDB Experience. Journal of Gastrointestinal Surgery 23: 679-685, 2019.
 - 22) Nies C, Zielke A, Hasse C, et al : Carcinoid tumors of Meckel' s diverticulum -report of two cases and review of the literature. Dis Colon Rectum 35:589- 596, 1992.