

Adenomyomatous hamartoma of the small bowel with anemia identified by double-balloon endoscopy

| | |
|-------|---|
| メタデータ | 言語: jpn 出版者: 公開日: 2017-10-03 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: メールアドレス: 所属: |
| URL | http://hdl.handle.net/2297/26398 |

症 例

貧血を契機にダブルバルーン小腸内視鏡で発見された
小腸 Adenomyomatous Hamartoma の 1 例堀井里和¹⁾ 山下竜也¹⁾ 加賀谷尚史¹⁾ 鷹取 元¹⁾ 砂子坂肇¹⁾
大石尚毅¹⁾ 荒井邦明¹⁾ 柿木嘉平太¹⁾ 北村星子²⁾ 金子周一¹⁾

1) 金沢大学付属病院 消化器内科, 2) 同 臨床病理科

要 旨

症例は基礎疾患としてC型肝硬変を有する82歳の女性で、黒色便、貧血を認めた。ダブルバルーン小腸内視鏡検査にて、近位空腸に70mm大の有茎性ポリープを認めた。外科的摘除を行い、病理組織学的にAdenomyomatous hamartomaと診断した。手術後、出血のエピソードは認めなかった。消化管出血の原因として小腸Adenomyomatous hamartomaは非常にまれであり、報告した。

Key words Adenomyomatous hamartoma/消化管出血

I 緒 言

小腸に発生したAdenomyomatous hamartomaの報告は少なく、そのほとんどは小児症例である。今回、Adenomyomatous hamartomaより出血をきたした症例を経験したため報告する。

II 症 例

症例：82歳、女性。

主訴：全身倦怠感、貧血。

既往歴：64歳乳癌にて左乳房切除術、48歳子宮筋腫にて卵巣・子宮全摘術。

家族歴：特記すべきことなし。

嗜好歴：喫煙飲酒なし。

現病歴：C型肝硬変、高血圧、糖尿病、慢性甲状腺炎にて当院に通院中であった。2005年頃より

徐々に血色素(Hb)の低下を認め、2006年12月上下部消化管内視鏡検査を施行したが、出血源となりうる病変は認めなかった。鉄剤の経口投与にて、2007年4月にはHbが8.2g/dlから12.4g/dlまで改善した。しかし、同年5月頃より全身倦怠感とともに黒色便が出現し、Hb7.8g/dlと貧血の進行を認めたため、5月入院となった。

身体所見：身長153cm、体重61kg、血圧108/62mmHg、心拍数62/min、整

結膜貧血あり、黄疸なく、表在リンパ節は触知しなかった。心音異常なし、左胸部に手術痕あり、腹部平坦軟、右下腹部、下腹部正中に手術痕あり。

入院時検査所見(Table 1)：正球性貧血、血清鉄の低下を認めた。肝予備能はChild-Pugh Aであった。

入院後経過：入院当日に上部消化管内視鏡検査を施行したが、慢性萎縮性胃炎の所見のみであった。また、下部消化管内視鏡検査でも、特記すべき異常は認めなかった。腹部・骨盤部造影CT検査、消化管出血シンチグラフィを施行したが、出血源となりうる病変は認めなかった。出血源検索のため、入院後10日目に経口的に小腸ダブルバルーン内視鏡検査を施行した。Treitz靭帯より約15cm肛門側に10×70mm大の細長い有茎性ポリ-

Table 1 入院時検査所見.

| 血算 | | 生化学 | | | |
|--------|------------------------------|---------------|------------|-------------|---------------|
| WBC | 6,100 / μ l | TP | 6.7 g/dl | Fe | 27 μ g/dl |
| RBC | 253×10^4 / μ l | Alb | 3.4 g/dl | フェリチン | 34 ng/ml |
| Hb | 7.8 g/dl | T-bil | 0.4 mg/dl | 腫瘍マーカー, その他 | |
| Ht | 25.2 % | AST | 37 IU/l | CEA | 2.7 ng/ml |
| MCV | 99.6 fL | ALT | 28 IU/l | CA19-9 | 22 U/ml |
| MCH | 30.8 pg | ALP | 409 IU/l | HBsAg | - |
| MCHC | 31.0 % | γ -GTP | 23 IU/l | HBsAb | - |
| Plt | 18.2×10^4 / μ l | T-Cho | 177 mg/dl | HCVAb | + |
| 凝固 | | TG | 97 mg/dl | | |
| PT | 12.2 sec | BUN | 18 mg/dl | | |
| PT-INR | 1.05 | Cr | 0.76 mg/dl | | |
| HPT | 70 % | CRP | 0.1 mg/dl | | |

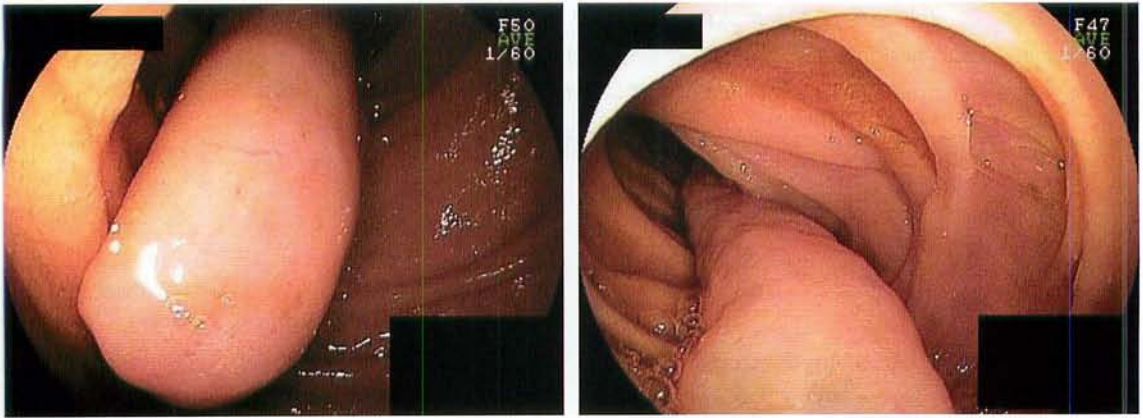


Figure 1 経口的小腸ダブルバルーン内視鏡所見.

70mm 大の表面平滑な、有莖性ポリープを Treitz 靱帯より 15cm 肛門側に認めた。出血点は確認できなかった。

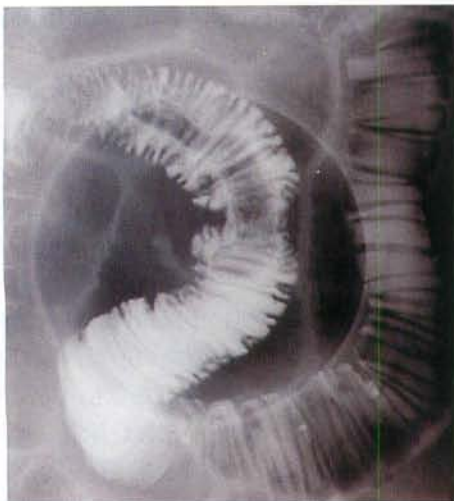


Figure 2 小腸造影所見.

空腸に 70mm 大の細長いポリープを認めた。

プを認めた (Figure 1)。表面は平滑で、周囲粘膜と色調はほぼ同じであり、観察時出血点を疑わせる所見は認めなかった。小腸造影でも同部位に細長いポリープを認めた (Figure 2)。超音波内視鏡検査 (EUS) では、ポリープ基部は第 3 層に連続していたため、粘膜下腫瘍と考えられた。内部には小嚢胞構造のほか、太い血管様構造を認めた (Figure 3-a, b)。単発の粘膜下腫瘍であり、孤在性 Peutz-Jeghers 型ポリープなど過誤腫病変が疑われた。上下部消化管内視鏡検査や小腸の他部位の観察で病変を認めなかったため、同病変を出血源と考えた。局在部位や大きさ、EUS 所見で太い血管様構造を有するため、内視鏡的摘除はリスクが高いと判断し、6 月、開腹下に小腸ポリープ切除術を施行した。

切除標本では、正常粘膜に覆われた $65 \times 15 \times 6$ mm 大の粘膜下腫瘍であった。断面には嚢胞を認

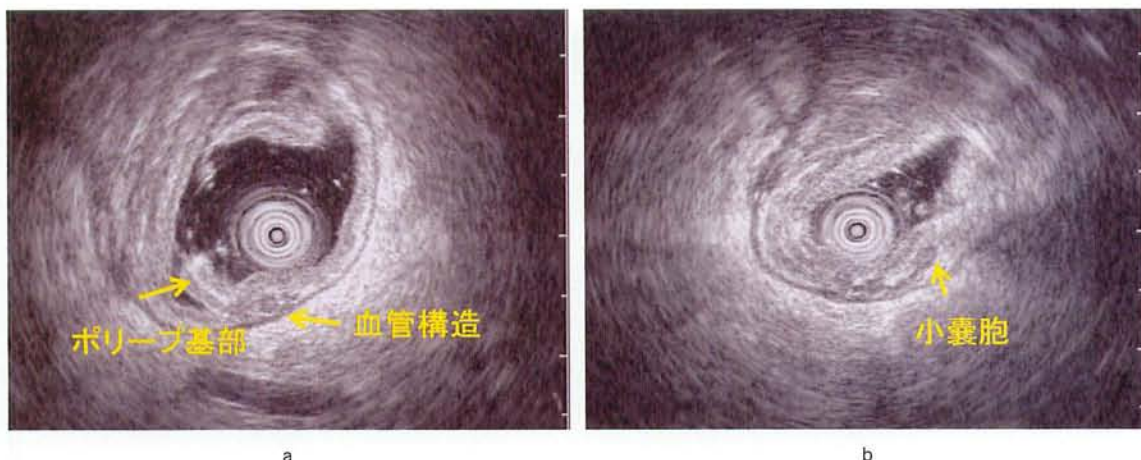


Figure 3 超音波内視鏡所見。
腫瘍は第3層に存在し、内部に小嚢胞構造、血管構造を認めた。



Figure 4 手術標本肉眼所見。
65×15×6 mm 大の粘膜下腫瘍で、断面には嚢胞状構造を認めた。



めた。(Figure 4)病理組織学的には、粘膜上皮下には Brunner 腺様の粘液栓の増生があり、間質には平滑筋や血管が介在していた。細胞異型や構造異型は認めず、複数の組織成分を認めた。一部には、導管構造の他、膵臓の腺房細胞も認めたことから、Adenomyomatous hamartoma と診断した (Figure 5-a~c)。孤立性 Peutz-Jeghers 型ポリープで認める粘膜筋板の樹枝状増殖は認めなかった。

術後経過は良好であり、退院となった。以後外来で約2年間経過観察しているが、黒色便や貧血の進行は認めていない。

III 考 按

小腸腫瘍は全消化管腫瘍の3~6%にすぎず¹⁾、小腸腫瘍が原因の消化管出血はまれである。

過誤腫は小腸腫瘍の1.5~4.5%といわれ²⁾、小腸に発生する孤立性過誤腫として、孤立性 Peutz-Jeghers 型ポリープ、Adenomyomatous hamartoma, Brunner 腺過誤腫などが挙げられる。

孤立性 Peutz-Jeghers 型ポリープは、Peutz-Jeghers 症候群で見られる隆起と同様の病変が、単発にみられるもので、上皮過形成と粘膜筋板の樹枝状増殖を特徴とする。これまで、小腸孤立性 Peutz-Jeghers 型ポリープは少なくとも14例報告されており、そのほとんどが空腸に認めていた。

Brunner 腺過誤腫は、表面は正常粘膜で覆われ、異型性のない Brunner 腺過形成と拡張導管、脂肪組織、リンパ組織、平滑筋組織などの間葉系組織により構成される。単発のポリープ状病変であり、有茎性であることが多く、これまで150例ほどの報告があり、半数以上は十二指腸球部に認

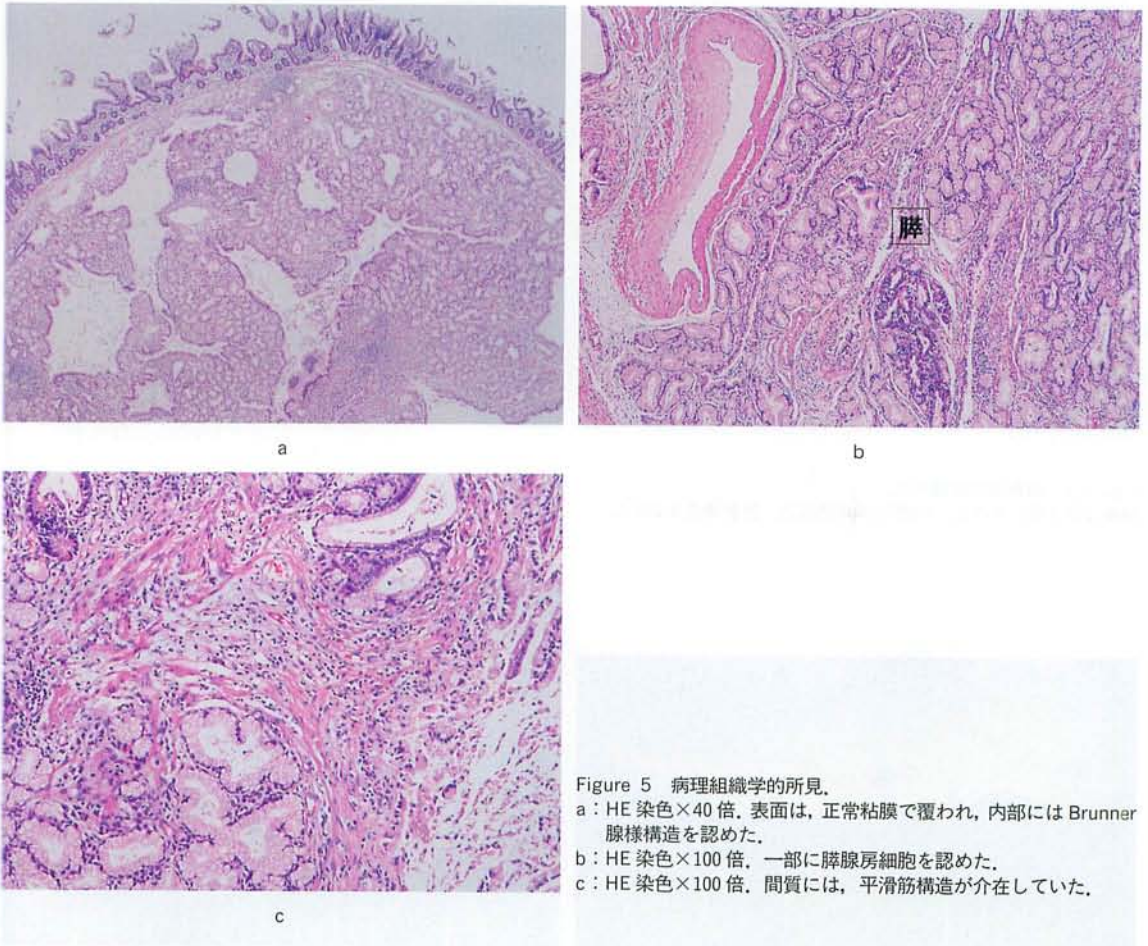


Figure 5 病理組織学的所見.

- a: HE 染色×40 倍. 表面は, 正常粘膜で覆われ, 内部には Brunner 腺様構造を認めた.
 b: HE 染色×100 倍. 一部に腺房細胞を認めた.
 c: HE 染色×100 倍. 間質には, 平滑筋構造が介在していた.

め, 十二指腸腫瘍の1%を占めるといわれる³⁾.

本症例で認めた Adenomyomatous hamartoma は別名, Adenomyoma, Myoepithelial hamartoma ともいわれる. 発生学的には, 小腸壁に発生した異所性腺組織の腫瘍状増生といわれ, 正常腺組織に分化した場合は異所性腺とよばれるが, Adenomyomatous hamartoma は, 腺房構造やラ氏島構造を有さない. 病理学的特徴としては, 粘膜下層に存在する腫瘍で, 平滑筋に囲まれた腺性組織を有し, 腺組織が嚢胞状構造をとることもある.

Adenomyomatous hamartoma はまれであり, 先述の別名を含めた病名にて, PubMed で1950年から現在まで検索しえた限りで本症例をあわせて22例の報告がある (Table 2). 形態は一部不明であった. 22例中13例は18歳以下に発症し, 嘔吐などの腸閉塞症状を呈するものがほとんどである. 成人症例では, 本症例のように出血・貧血を

認めるものや無症状の症例までさまざまである. ほとんどが2cm以下であるが, 本症例のように巨大な腫瘍も存在する.

診断には, 小腸造影検査, CT 検査に加え, 近年行われるようになったカプセル内視鏡やダブルバルーン小腸内視鏡検査が有用であると考えられる. これまでの報告では, 小腸造影検査でポリープを認め, 外科的切除にて確定診断された症例がほとんどである. ダブルバルーン小腸内視鏡検査にて発見されたのは, 本症例が検索しえた限りでは初めてである. ただし, Adenomyomatous hamartoma の場合, 病変が粘膜下層に存在することから, 内視鏡的に生検したとしても診断に難渋することもある. 外科的切除が, 治療のみならず, 診断につながった症例がほとんどであり, 内視鏡的摘除の報告は, 現在のところない. 本症例では, 内視鏡検査や切除標本肉眼所見では, びらん, 出血点は, 明らかには認めなかったが, 全小

Table 2 Adenomyomatous hamartoma の報告例.

| | 年齢 | 性別 | 症状 | 腸重積 | 部位 | 大きさ (cm) |
|-------------------------------|----------|----|------------|-----|----|----------|
| Clarke ⁴⁾ | 64 Y | M | なし | - | 空腸 | 1 |
| Schwartz ⁵⁾ | 8 M | M | 嘔吐 | + | 回腸 | 2 |
| Gal ⁶⁾ | 82 Y | F | 嘔吐, 疼痛 | + | 回腸 | 2 |
| Kim ⁷⁾ | 7 Y | M | 嘔吐, 疼痛 | + | 空腸 | 4 |
| Lamki ⁸⁾ | 1 Y 10 M | M | 嘔吐, 疼痛 | + | 回腸 | 1.5 |
| Gourtsoyiannis ⁹⁾ | 51 Y | F | 貧血 | - | 空腸 | 1.5 |
| Chan ¹⁰⁾ | 5 M | F | 疼痛 | + | 回腸 | 0.8 |
| | 3 Y | M | 嘔吐, 疼痛 | - | 空腸 | 7 |
| Serour ¹¹⁾ | 3 Y | M | 嘔吐, 疼痛 | + | 回腸 | 2 |
| Gonzalvez ¹²⁾ | 2 Y | M | 嘔吐, 出血 | + | 回腸 | 1 |
| Tanaka ¹³⁾ | 24 Y | M | 疼痛, 出血 | - | 回腸 | 1.5 |
| Hizawa ¹⁴⁾ | 23 Y | F | なし | - | 空腸 | 不明 |
| Yamagami ¹⁵⁾ | 4 M | M | 嘔吐 | + | 回腸 | 不明 |
| Van Helden ¹⁶⁾ | 65 Y | M | 出血, 貧血 | - | 空腸 | 1.5 |
| Lee ¹⁷⁾ | 18 Y | M | 嘔吐, 疼痛 | + | 空腸 | 4.5 |
| Mouravas ¹⁸⁾ | 1 Y 6 M | M | 嘔吐, 疼痛, 出血 | + | 回腸 | 1.5 |
| Park ¹⁹⁾ | 7 M | M | 嘔吐, 出血 | + | 回腸 | 1.2 |
| | 63 Y | M | 排便困難 | - | 空腸 | 1.3 |
| Lo Bello Gemma ²⁰⁾ | 13 Y | F | 嘔吐, 疼痛 | + | 空腸 | 3.5 |
| Ikegami ²¹⁾ | 5 M | F | 嘔吐 | + | 回腸 | 1.5 |
| Yu ²²⁾ | 74 Y | F | 出血, 貧血 | - | 空腸 | 1.5 |
| 本症例 | 82 Y | F | 出血, 貧血 | - | 空腸 | 6.5 |

腸を含ま消化管精査の上、当該病変以外に出血源となりうる病変がないことから、直接の出血源と診断した。太い血管を内部に認めたため、外科的切除となったが、病変の部位や、形態によっては、内視鏡摘除が考慮される場合もあると考えられる。予後については、術後の再発の報告はなく、良好である。

IV 結 語

消化管出血の原因として、非常にまれな小腸 Adenomyomatous hamartoma の症例を報告した。ダブルバルーン小腸内視鏡検査が出血源検索には有用であったが、確定診断・治療には外科的摘除を必要とした。

文 献

1. Herbsman H, Wetsein L, Rosen Y et al. Tumors of small intestine. *Curr Probl Surg* 1980 ; 17 : 121-82.
2. Silberman H, Cricholow RW, Caplan HS. Neoplasms of the small bowel. *Ann Surg* 1974 ; 180 : 157-61.
3. Botsford TW, Crowe P, Crocker DW. Tumors of small intestine. *Am J Surg* 1962 ; 103 : 358-65.
4. Clarke BE. Myoepithelial hamartoma of the gastrointestinal tract : a report of eight cases and comments concerning genes and nomenclature. *Arch Pathol* 1940 ; 30 : 143-52.
5. Schwartz SI, Radwin HM. Myoepithelial hamartoma of the ileum causing intussusception. *AMA Arch Surg* 1958 ; 77 : 102-4.
6. Gal R, Kolkow Z, Nobel M. Adenomyomatous hamartoma of the small intestine : a rare case of intussusceptions in adults. *Am J Gastroenterol* 1986 ; 80 : 1209-11.
7. Kim CJ, Choe GY, Chi JG. Foregut Choristoma of the ileum, (adenomyoma) — a case report. *Pediatr Pathol* 1990 ; 10 : 799-805.
8. Lamki N, Woo CL. Adenomyomatous hamartoma causing ileoileal intussusception in a young child. *Clin Imaging* 1993 ; 17 : 183-5.
9. Gourtsoyiannis NC, Bays D, Papaioannou N. Benign tumors of the small intestine : preoperative evaluation with a barium infusion technique. *Eur J*

- Radiol 1993 ; 16 : 115-25.
10. Chan YF, Roche D. Adenomyoma of the small intestine in children. *J Pediatr Surg* 1994 ; 29 : 1611-2.
 11. Serour F, Gorenstein A, Lipnitzky. Adenomyoma of the small bowel : a rare cause of intussusception in childhood. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1994 ; 18 : 247-9.
 12. Gonzalez J, Macro A, Andujar M et al. Myoepithelial hamartoma of the ileum : a rare cause of intestinal intussusception in children. *Eur J Pediatr Surg* 1995 ; 5 : 303-4.
 13. Tanaka N, Seya T, Onda M et al. Myoepithelial hamartoma of the small bowel : report of a case. *Surg today* 1996 ; 26 : 1010-3.
 14. Hizawa K, Iida M, Aoyagi K et al. Jejunal myoepithelial hamartoma associated with Gardner's syndrome : a case report. *Endoscopy* 1996 ; 28 : 727.
 15. Yamagami T, Tokiwa K, Iwai N. Myoepithelial hamartoma of the ileum causing intussusception in an infant. *Pediatr Surg Int* 1997 ; 12 : 206-7.
 16. Van Helden SH, Jutten G, Van Hoey H et al. Jejunal hamartoma as a rare cause of gastrointestinal haemorrhage. *Histopathology* 1998 ; 32 : 574-5.
 17. Lee JS, Kim HS, Jung JJ et al. Adenomyoma of the small intestine in an adult : a rare cause of intussusception. *J Gastroenterol* 2002 ; 37 : 556-9.
 18. Mouravas V, Koutsoumis G, Patoulias J et al. Adenomyoma of the small intestine in children : a rare cause of intussusception : a case report. *Turk J Pediatr* 2003 ; 45 : 345-7.
 19. Park HS, Lee SO, Lee JM et al. Adenomyoma of the small intestine : report of two cases and review of the literature. *Pathol Int* 2003 ; 53 : 111-4.
 20. Lo Bello Gemma G, Corradino R, Cavuoto F et al. Myoepithelial jejunal hamartoma causing small bowel intussusception and volvulus. *Radio Med (Torino)* 2003 ; 105 : 246-9.
 21. Ikegami R, Watanabe Y, Tainaka T. Myoepithelial hamartoma causing small-bowel intussusceptions : a case report and literature review. *Pediatr Surg Int* 2006 ; 22 : 387-9.
 22. Yu HC, Lo GH, Lai KH et al. Adenomyoma of the jejunum — A rare cause of Gastrointestinal bleeding. *J Chin Med Assoc* 2008 ; 71 : 96-9.

論文受付 平成21年 6 月30日

同 受理 平成22年 4 月14日

ADENOMYOMATOUS HAMARTOMA OF THE SMALL BOWEL WITH ANEMIA IDENTIFIED BY DOUBLE-BALLOON ENDOSCOPY

Rika HORII¹⁾, Tatsuya YAMASHITA¹⁾, Takashi KAGAYA¹⁾,
Hajime TAKATORI¹⁾, Hajime SUNAGOZAKA¹⁾, Naoki OOISHI¹⁾,
Kuniaki ARAI¹⁾, Kaheita KAKINOKI¹⁾, Seiko KITAMURA²⁾
AND Shuichi KANEKO¹⁾

1) *Department of Gastroenterology, Kanazawa University.*

2) *Department of Pathology, Kanazawa University.*

We report a 82-year-old female with liver chirrrosis who presented melena and anemia. Initial upper GI endoscopy, colonoscopy and computed tomography failed to find the bleeder. Double balloon endoscopy revealed sub mucosal nodule about 60mm in diameter located at proximal jejunum. Surgical resection was carried out.

Pathologic examination indicated that the tumor was adenomyomatous hamartoma. The patient was symptom-free after the operation.