

症 例

消化管出血を契機に発見された Meckel 憩室に発生した 壁内発育型小腸 Gastrointestinal stromal tumor の 1 例

林 武弘¹⁾ 鷹取 元¹⁾ 北村和哉¹⁾ 加賀谷尚史¹⁾ 酒井佳夫¹⁾
中村慶史²⁾ 藤田秀人²⁾ 藤村 隆²⁾ 北村星子³⁾ 金子周一¹⁾

1) 金沢大学附属病院 消化器内科, 2) 同 胃腸外科, 3) 同 病理部

要 旨

症例は 62 歳女性. 新鮮血下血にて受診した. 小腸造影, 経肛門的ダブルバルーン内視鏡にて Meckel 憩室と診断し, 回腸部分切除術を施行した. 術後の病理組織において憩室壁内に紡錘形細胞の増殖を認めた. 免疫染色において c-kit 陽性, CD34 陽性, desmin 陰性, S-100 陰性であり Gastrointestinal stromal tumor (GIST) と診断した. Meckel 憩室壁内に GIST を合併することはまれであるが, Meckel 憩室の診断に至った際には, 随伴する腫瘍合併の可能性も念頭に置き, 検索を進める必要がある.

Key words Meckel 憩室 / Gastrointestinal stromal tumor / GIST

I 緒 言

Gastrointestinal stromal tumor (GIST) は食道から直腸までの全消化管に発生し, 平滑筋層ないしは粘膜筋板層をその発生母地とする間葉系腫瘍であり, その発生頻度は全消化管腫瘍の 0.2~0.5% とされる¹⁾. 一方, Meckel 憩室は卵黄腸管の腸側遺残物として報告された回腸の真性憩室であり, その頻度は全剖検例の約 2~3% 程度とされる²⁾. 今回われわれは大量下血を契機に発見された, Meckel 憩室に発生した壁内発育型小腸 GIST の 1 例を経験したので報告する.

II 症 例

症例: 62 歳, 女性.

主訴: 下血.

既往歴: 特記事項なし.

家族歴: 特記事項なし.

嗜好歴: 飲酒歴なし, 喫煙歴なし.

現病歴: 2007 年 1 月に新鮮血下血を認め近医を受診した. 下部消化管内視鏡検査にて結腸憩室出血と診断され, 保存的治療により改善した. その後も腹痛や排便異常の訴えがあり, 過敏性腸症候群として整腸剤等が処方されていた.

2008 年 11 月に暗赤色の下血を認めたため再び近医を受診し, 入院となった. 上部・下部消化管内視鏡検査では, 結腸憩室を認めるのみであり, 保存的加療が行われた. 第 9 病日に再度大量の下血が出現し, 血圧も低下した. 第 13 病日までに合計 16 単位の濃厚赤血球液輸血が行われた. 再度の下部消化管内視鏡検査において, 終末回腸内に大量の新鮮血が認められたことから, 小腸からの出血が疑われ, 精査加療目的に第 18 病日当院紹介入院となった.

入院時現症: 眼瞼結膜に軽度の貧血を認めた. 腹部は平坦, 軟で圧痛, 腫瘍は認めなかった.

入院時血液検査所見: Hb 10.1g/dl, TP 5.4g/dl, Alb 3.1g/dl と貧血, 低蛋白血症を認めた. CEA < 2.0ng/ml, CA19-9 5 U/ml と腫瘍マーカーに異常は認めなかった.

腹部 CT 検査所見 (Figure 1-a): 骨盤内小腸

Gastroenterol Endosc 2013; 55: 3382-8.

Takehiro HAYASHI

A Case of Gastrointestinal Stromal Tumor Arising from Meckel's Diverticulum with Gastrointestinal Bleeding.

別刷請求先: 〒 920-8641 金沢市宝町 13-1

金沢大学大学院 医学系研究科環境医科学専攻恒常性制御学
林 武弘

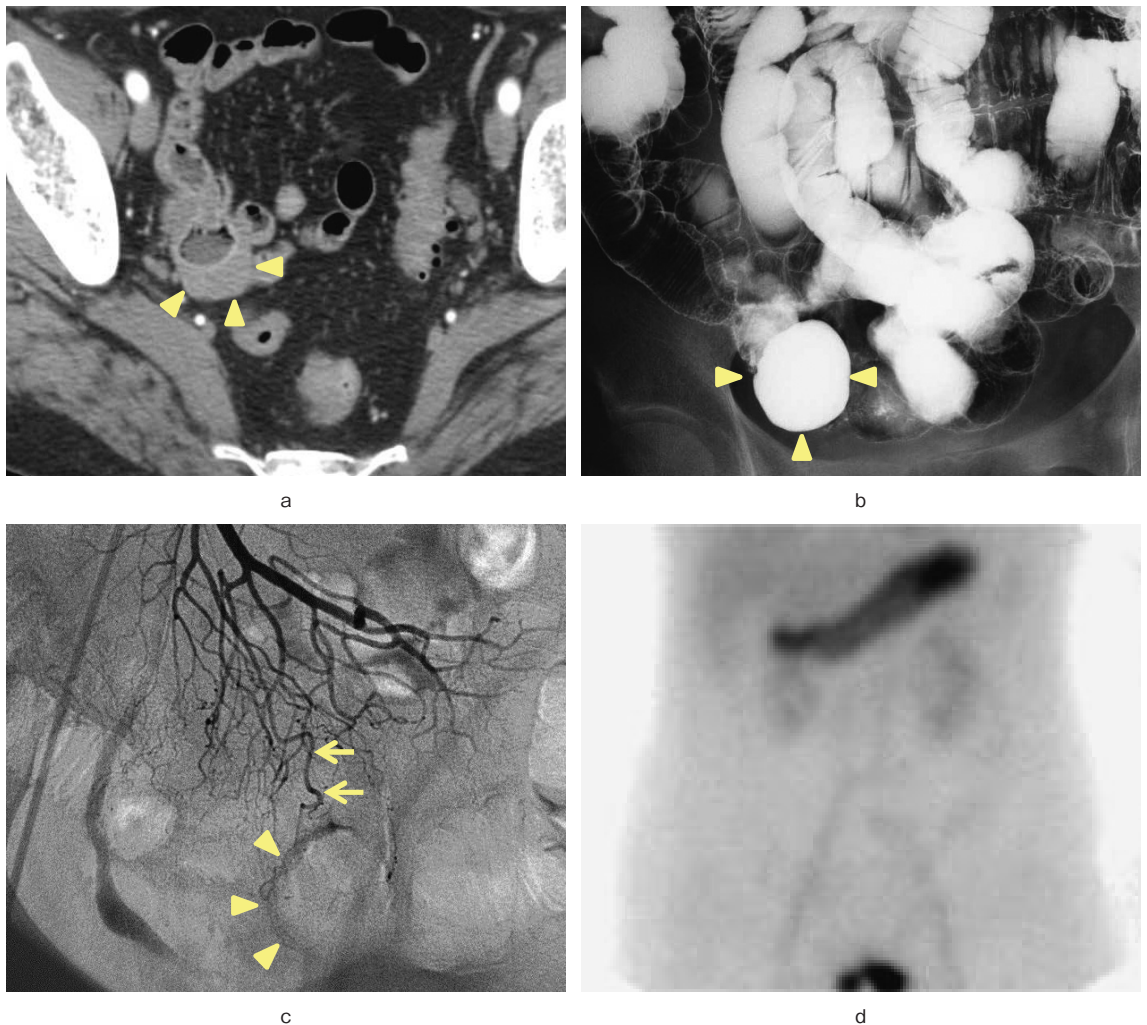


Figure 1 画像検査所見.

- a: 腹部 CT 検査所見. 骨盤内小腸に憩室様の腸管壁の突出および一部に壁の肥厚を認めた.
 b: 小腸造影検査所見. 回盲弁より 80cm 程度口側の腸間膜附着部対側に 3 cm 径の憩室を認めた.
 c: 腹部血管撮影所見. 上腸間膜動脈より流入し, 憩室壁に沿う毛細血管の増生を認めた.
 d: Meckel 憩室シンチグラム所見. 胃粘膜の存在を示唆する集積は認めなかった.

に憩室様の腸管壁の突出および一部に壁の肥厚を認めた.

小腸造影検査所見 (Figure 1-b): 回盲弁より約 80cm 口側の腸間膜附着部対側に 3 cm 径の憩室を認めた.

腹部血管撮影所見 (Figure 1-c): 骨盤腔内に上腸間膜動脈より流入し, 憩室壁に沿う毛細血管の増生を認めた.

Meckel 憩室シンチグラム所見 (Figure 1-d): 憩室内の異所性胃粘膜の存在は認めなかった.

内視鏡検査所見 (Figure 2-a): 経肛門的ダブルバルーン内視鏡検査において回盲弁より約

80cm 口側に憩室開口部を認めた. 内視鏡下造影にて憩室であることを確認した.

臨床経過: 各種画像診断の結果より, Meckel 憩室からの出血と診断し, 憩室の切除を目的として, 第 41 病日に手術を行った.

術中内視鏡所見 (Figure 2-b): 回腸に憩室開口部を認めた. 憩室内腔は健全粘膜に被覆されており, 一部に少量の血餅の付着を認めた.

手術所見: 回盲弁より 80cm 程度口側の腸間膜附着部対側に約 3 cm の憩室を認めた (Figure 3-a). 憩室を含めた回腸部分切除術を施行した. 切除標本の翻転像を示す (Figure 3-b).

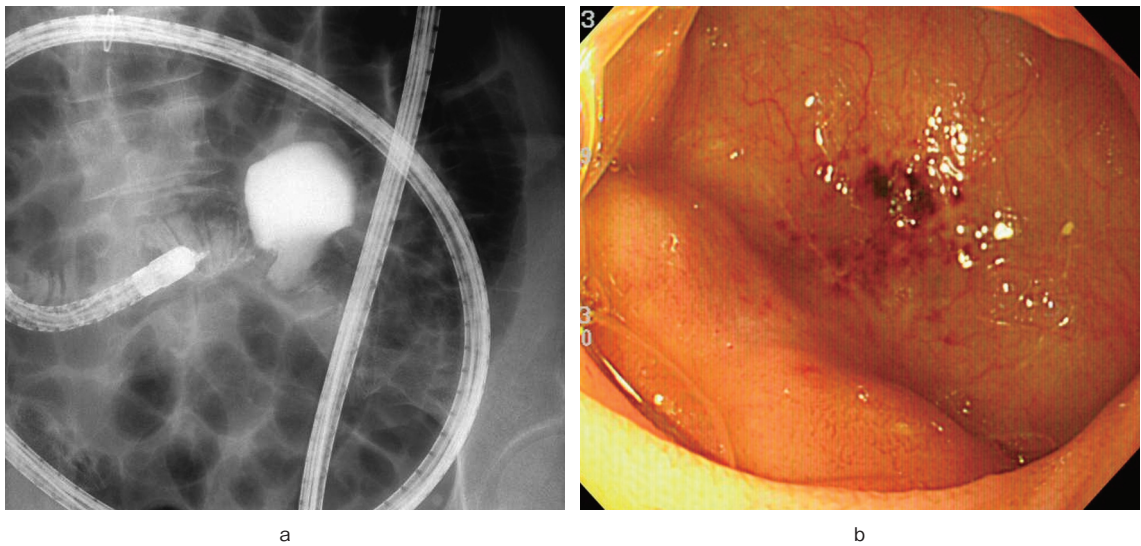


Figure 2 内視鏡検査所見.

a: ダブルバルーン内視鏡検査. 回盲部より80cm程度口側に憩室開口部を認め、内視鏡下造影にて確認した.
b: 術中内視鏡検査. 憩室内腔は健康粘膜に被覆され、一部に少量の血餅の付着を認めた.

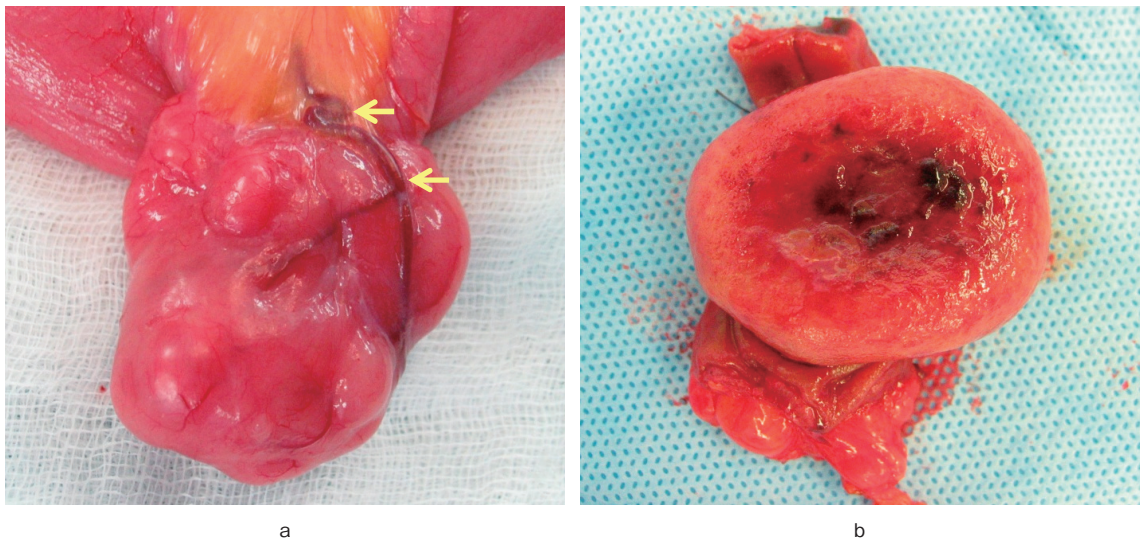


Figure 3 手術所見.

a: 回盲部より80cm程度口側の腸間膜附着部対側に約3cmの憩室を認めた.
b: 病変翻転像. 憩室内粘膜に血餅の付着を認めた.

病理組織所見 (Figure 4): 3.3cmの憩室を認めた. 断面では憩室部分に灰白色調の壁肥厚を認めた (Figure 4-a). 腸管内腔面は回腸粘膜で被覆され、一部に出血を認めた. 異所性粘膜の迷入は認めなかった.

H.E.染色ではびまん性に好酸性細胞質を有する紡錘形細胞の増殖を認め (Figure 4-b), 間葉系腫瘍と考えられた. 免疫染色において c-kit (Fig-

ure 4-c) 陽性, CD34 陽性であり, desmin 陰性, S-100 陰性であることより GIST と診断した. 腫瘍径が 3.3cm であること, 核分裂像が 50 強視野で 1 個以下であることより low risk³⁾ と評価した.

術後経過: 術後経過は良好であり第 54 病日 (術後 13 日) に退院した. 退院後, 2 年間の経過でも下血はなく, 術前に認めた腹痛や排便異常の症状も消失した. GIST に関しては定期的な画像検査

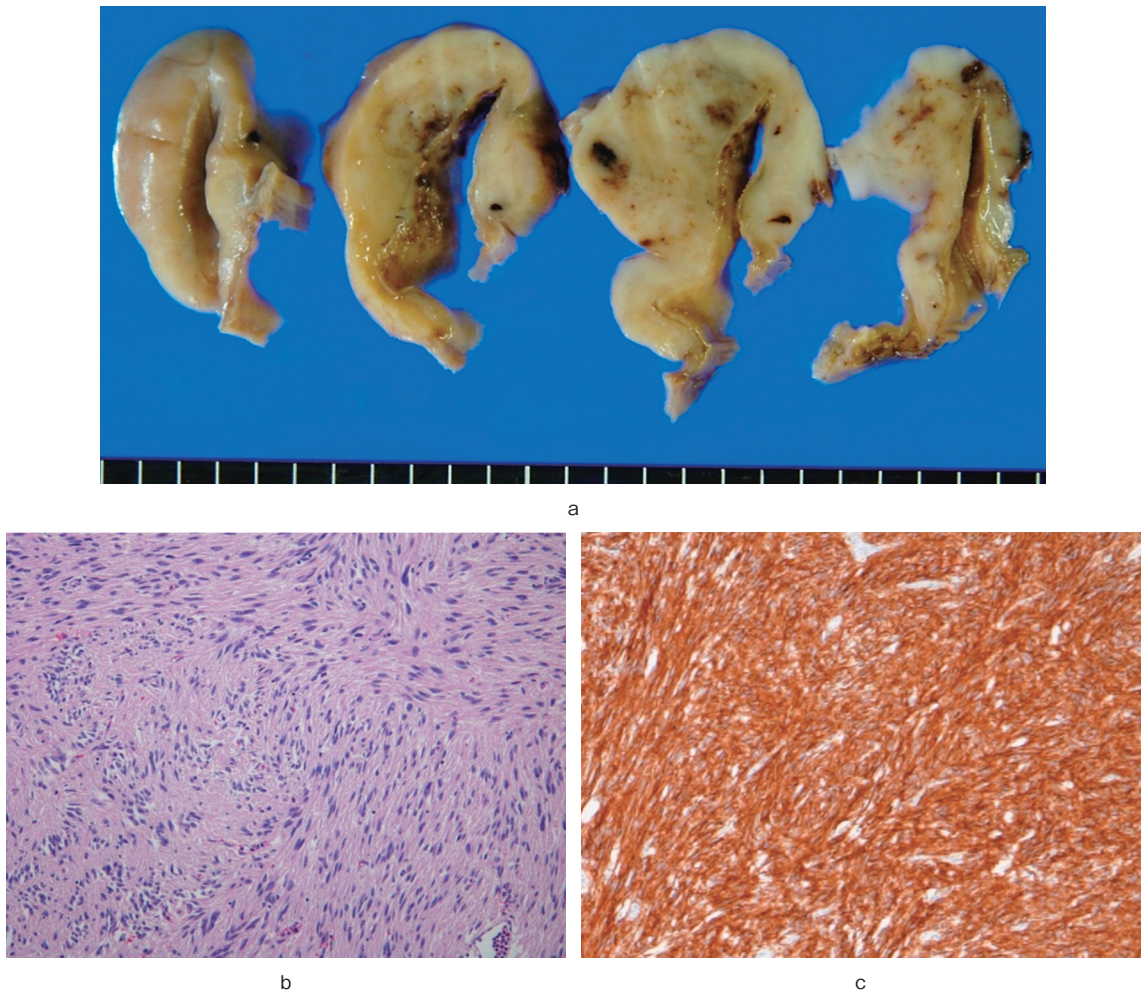


Figure 4 病理所見.

a: 標本断面では憩室部分に灰白色調の壁肥厚を認めた.

b: H.E. 染色ではびまん性に好酸性細胞質を有する紡錘形細胞の増殖を認める (×100).

c: 免疫染色. c-kit 陽性であった (×100).

を行っている.

III 考 察

消化管に発生する間葉系腫瘍は GIST や筋原性腫瘍, 神経原性腫瘍が代表的であるが, 発生頻度が最も高い腫瘍は GIST であり 80% を占める. GIST の多くは c-kit 陽性, CD34 陽性であり, 同じ c-kit 陽性, CD34 陽性である Cajal の介在細胞 (interstitial cells of Cajal) がその由来であると考えられている. GIST は平滑筋層ないしは粘膜筋板のある食道から直腸までの全消化管に発生するが, その相対的発生頻度は全消化管腫瘍の 0.2~0.5% とされ, 臓器別発生頻度は胃 50~70%, 小腸 20

~30%, 大腸 10%, 食道 10% とされる¹⁾. 発育進展様式として壁内発育型, 管内発育型, 管外発育型, 混合型に分類されるが, 小腸の GIST は管外発育型をとるものが多く, 通過障害は比較的起こりにくいとされる. 腹痛, 消化管出血, 腹部腫瘍が三大症状である. 本症例において以前より認められていた腹痛, 排便異常は回腸部分切除術後より認めなくなったことより, これらの症状は GIST の存在と関連があったものと考えられる.

Meckel 憩室とは Johan F. Meckel により卵黄腸管の腸側遺残物として報告された回腸の真性憩室であり, 腸間膜付着部対側に発生し, 多くは回腸末端から口側 40~100cm の範囲に存在する. 剖

Table 1 過去症例報告.

症例	報告年	筆頭著者	年齢	性別	初発症状	術前検査	術前診断	治療	最大腫瘍径
1	2001	Johnston ⁽⁷⁾	58	男性	回盲部の疼痛	CT, US	腸間膜嚢胞ないしは腸間膜由来の軟部肉腫	手術	60mm
2	2001	坂田 ⁽⁸⁾	69	男性	下血	CT, MRI, 血管造影	後膀胱腫瘍	手術	80mm
3	2002	Stolk ⁽⁹⁾	50	男性	血便, 呼吸困難	99mTc-erythrocyte nuclear scan, 血管造影, 上部・下部消化管内視鏡	Meckel憩室ないしは小腸腫瘍	手術	50mm
4	2004	Szentpál ⁽¹⁰⁾	70	男性	右下腹部痛	US	記載なし	手術	120mm
5	2005	Biemans ⁽¹¹⁾	50	男性	血便, 嘔気, 呼吸困難	99mTc-erythrocyte nuclear scan, 血管造影, 上部・下部消化管内視鏡	記載なし	手術	50mm
6	2005	Hager ⁽¹²⁾	75	男性	消化管穿孔	CT	消化管穿孔	手術	25mm
7	2005	Mijantruscic ⁽¹³⁾	81	男性	突然の腹部疼痛, 便秘, 嘔吐	US	イレウス	手術	50mm
8	2006	宮平 ⁽¹⁴⁾	63	女性	腹痛, 嘔吐	CT, US, 血管造影, 小腸造影	小腸GIST	手術	95mm
9	2007	Khoury ⁽¹⁵⁾	28	男性	腹痛, 嘔吐	CT	Meckel憩室	手術	115mm
10	2007	Chandramohan ⁽¹⁶⁾	65	男性	便秘, 下血	CT, 下部消化管内視鏡	小腸腫瘍	手術	90mm
11	2007	Koman ⁽¹⁷⁾	79	男性	下血	CT	記載なし	手術	140mm
12	2009	Woolf ⁽¹⁸⁾	59	男性	回盲部の疼痛	記載なし	急性虫垂炎	手術	45mm
13	2009	Kosmidis ⁽¹⁹⁾	69	男性	腹部膨満, 下血	CT, US	結腸癌 (術中に偶然発見)	手術	75mm
14	2010	Lemon ⁽²⁰⁾	34	男性	腹痛, 下血	CT, US, 血管造影, 上部消化管内視鏡	記載なし	手術	50mm
15	2010	Dogruel ⁽²¹⁾	86	男性	消化管穿孔	CT	消化管穿孔	手術	80mm
16	2010	Var ⁽²²⁾	68	男性	腹痛, 嘔気	CT	記載なし	手術	35mm
17	2010	Leung ⁽²³⁾	92	男性	腹部膨満, 嘔気	CT	記載なし	手術	75mm
18	2010	Carcao ⁽²⁴⁾	65	男性	高度の腹痛	CT	消化管穿孔	手術	45mm
19	2011	自験例	62	女性	下血	CT, 血管造影, 小腸造影, 上部・下部内視鏡, ダブルバルーン内視鏡	Meckel憩室	手術	33mm

検例の 2～3% に認められ、大部分は無症状に経過する。合併症を呈する Meckel 憩室は 4% 程度とされ、下血、穿孔、腸重積、腸閉塞、化膿性憩室炎が主なものである。合併症を有する Meckel 憩室の約半数に、異所性組織の迷入が認められ、胃粘膜が大半を占めるが、ほかに瘻組織、十二指腸粘膜などが知られている²⁾。

Meckel 憩室内に腫瘍が合併する頻度は 0.5～3.2%^{4)～6)} と報告されており、発生する腫瘍は GIST のほか、腺癌、カルチノイド、平滑筋腫瘍など様々である。1983 年～2011 年の期間における医学中央雑誌での [Meckel 憩室 and GIST (会議録除く)], [Meckel 憩室 and 腫瘍 (会議録除く)], [Meckel 憩室腫瘍 (会議録除く)] および Pubmed での [Meckel's diverticulum and Gastrointestinal stromal tumor], [Meckel's diverticulum and Gastrointestinal stromal tumour] での検索では、過去に本邦では 2 例、英文では 16 例の症例報告があった (Table 1)^{7)～24)}。平均年齢は 64.4 歳 (28～92 歳)、89% が男性であり、女性での報告は本症例を含め 2 例 (11%) と少なかった。平均腫瘍径は 69.1mm (25～140mm) であり、下血を契機に発見された症例は自験例を含め 8 例 (42%) であった。多くの症例で術前に腹部 CT 検査が施行されていたが、術前に GIST および Meckel 憩室双方の正確な診断がなされた症例はなかった。全例で手術治療が施行され、術後の病理組織検査により確定診断に至っており、術前診断が困難な病態と考えられた。過去の報告例では腫瘍径 50mm 以上の病変においては腫瘍の管外性発育により、腹部腫瘍として病変を発見される症例が多く、一方、腫瘍径 50mm 以下の小さいものでは腫瘍の診断自体が術前になされていないものが多い。自験例では腫瘍径は 33mm と比較的小さかったこと、また術後の病理組織からは壁内発育型の発育進展様式を呈しており、粘膜面、漿膜面への腫瘍の露出が認められなかったことが、術前の画像診断、内視鏡診断、また術中所見において Meckel 憩室内の GIST の併存を認識できなかった原因と考えられた。

IV 結 語

Meckel 憩室に発生し、大量出血をきたした壁内発育型小腸 GIST の 1 例を経験したので報告する。Meckel 憩室の診断に至った際には、随伴する腫瘍

合併の可能性も念頭に置き、検索を進める必要があると考えられた。

文 献

1. 工藤俊彦, 中島隆彦, 杉山敏郎. 胃 GIST. 別冊日本臨床 消化管症候群 (第 2 版) 上, 日本臨床社, 2009; 249-53.
2. 小高哲郎, 金森 豊. Meckel 憩室. 別冊日本臨床 消化管症候群 (第 2 版) 下, 日本臨床社, 2009; 529-33.
3. Fletcher CD, Berman JJ, Corless C et al. Diagnosis of gastrointestinal stromal tumors: A consensus approach. *Hum Pathol* 2002; 33: 459-65.
4. Soltero MJ, Bill AH. The natural history of Meckel's Diverticulum and its relation to incidental removal. A study of 202 cases of diseased Meckel's Diverticulum found in King County, Washington, over a fifteen year period. *Am J Surg* 1976; 132: 168-73.
5. Yamaguchi M, Takeuchi S, Awazu S. Meckel's diverticulum. Investigation of 600 patients in Japanese literature. *Am J Surg* 1978; 136: 247-9.
6. Kusumoto H, Yoshida M, Takahashi I. Complications and diagnosis of Meckel's diverticulum in 776 patients. *Am J Surg* 1992; 164: 382-3.
7. Johnston AT, Khan AL, Bleakney R et al. Stromal tumour within a Meckel's diverticulum: CT and ultrasound findings. *Br J Radiol* 2001; 74: 1142-4.
8. 坂田直昭, 鈴木正徳, 海野倫明ほか. 下血を主訴として発見された Meckel 憩室腫瘍の 1 例. *日臨外会誌* 2001; 62: 415-20.
9. Stolk MF, de Jong AE, van Ramshorst B. Intestinal bleeding due to a stromal tumor in a Meckel's diverticulum. *Gastrointest Endosc* 2002; 56: 147-9.
10. Szentpáli K, Palotás A, Wolfárd A et al. A gastrointestinal stromal tumour presenting in a perforated Meckel's diverticulum. *Can J Surg* 2004; 47: 70.
11. Biemans JM, Vos JA. Bleeding stromal tumor in Meckel's diverticulum. *JBR-BTR*. 2005; 88: 112-3.
12. Hager M, Maier H, Eberwein M et al. Perforated Meckel's diverticulum presenting as a gastrointestinal stromal tumor: a case report. *J Gastrointest Surg* 2005; 9: 809.
13. Mijandrusić Sincić B, Kovac D, Jasić M et al. Crohn's disease and a gastrointestinal stromal tumor in an 81-year-old man — a rare coincidence. *Zentralbl Chir* 2005; 130: 597-9.
14. 宮平 工, 阿嘉裕之, 友利健彦ほか. Meckel 憩室に発生し、CA125 が高値であった小腸 GIST の 1 例. *臨外* 2006; 61: 1277-81.
15. Khoury MG 2nd, Aulicino MR. Gastrointestinal stromal tumor (GIST) presenting in a Meckel's diverticulum. *Abdom Imaging* 2007; 32: 78-80.
16. Chandramohan K, Agarwal M, Gurjar G et al. Gastrointestinal stromal tumour in Meckel's diverticulum. *World J Surg Oncol* 2007; 5: 50.
17. Komen DJ, Kingma PJ, Gerrits MA et al. An unusual cause of rectal bleeding. *Neth J Med* 2007; 65: 407-8.

18. Woolf R, Blencowe N, Muhammad K et al. A gastrointestinal stromal tumour presenting incidentally with haemorrhage and perforation associated with a Meckel's diverticulum: a case report. *J Med Case Reports* 2009 ; 3 : 7423.
19. Kosmidis C, Efthimiadis C, Levva S et al. Synchronous colorectal adenocarcinoma and gastrointestinal stromal tumor in Meckel's diverticulum: an unusual association. *World J Surg Oncol* 2009 ; 7 : 33.
20. Lemos AA, Bredolo F, Chiaraviglio F et al. Synchronous Meckel's diverticulum and gastrointestinal stromal tumour presenting as acute bleeding. *Dig Liver Dis* 2010 ; 42 : 661.
21. Dogrul AB, Kilic YA, Onurdag F et al. A gastrointestinal stromal tumor in Meckel diverticulum in an 86-year-old patient. *Am J Med Sci* 2010 ; 340 : 156-7.
22. Van Loo S, Van Thielen J, Cools P. Gastrointestinal bleeding caused by a GIST of Meckel's diverticulum — a case report. *Acta Chir Belg* 2010 ; 110 : 365-6.
23. Leung U, Purkiss S. Bowel obstruction by a gastrointestinal stromal tumour in a Meckel's diverticulum. *ANZ J Surg* 2010 ; 80 : 855-6.
24. Caricato M, Mangiameli G, Miccadei F et al. A rare case of complicated Meckel's diverticulum. Case report and images. *Ann Ital Chir* 2010 ; 81 : 449-51.

論文受付 平成24年 9月11日
同 受理 平成25年 4月17日

A CASE OF GASTROINTESTINAL STROMAL TUMOR ARISING FROM MECKEL'S DIVERTICULUM WITH GASTROINTESTINAL BLEEDING

Takehiro HAYASHI¹⁾, Hajime TAKATORI¹⁾, Kazuya KITAMURA¹⁾,
Takashi KAGAYA¹⁾, Yoshio SAKAI¹⁾, Keishi NAKAMURA²⁾,
Hideto FUJITA²⁾, Takashi FUJIMURA²⁾, Seiko KITAMURA³⁾
AND Shuichi KANEKO¹⁾

1) *Department of Gastroenterology, Kanazawa University Hospital.*

2) *Department of Gastrointestinal and Colorectal Surgery, Kanazawa University Hospital.*

3) *Central Medical Facilities, Pathology Section, Kanazawa University Hospital.*

A 62-year-old woman was admitted to our hospital because of lower intestinal bleeding. The diagnosis of Meckel's diverticulum was made by small bowel imaging and transanal double-balloon enteroscopic examination. Partial resection of the ileum was performed. Pathological examination of the resected specimen showed proliferation of spindle-shaped cells in the wall of the diverticulum. The tumor was diagnosed as a gastrointestinal stromal tumor (GIST) by reason of immunohistochemical staining that was positive for c-kit and CD34 and negative for desmin and S-100. The coexistence of Meckel's diverticulum and GIST is considered to be rare. However, when Meckel's diverticulum is diagnosed, the possibility of the coexistence of neoplastic diseases should be kept in mind.