

卵黄腸管嚢胞の1例

奈良県立医科大学泌尿器科学教室 (主任: 岡島英五郎教授)

丘田 英人, 三馬 省二, 百瀬 均, 辻本 賀洋
永吉 純一, 岩井 哲郎, 平尾 佳彦, 岡島英五郎

A CASE OF VITELLO INTESTINAL CYST

Hideto Okada, Shoji Samma, Hitoshi Momose,
Shigehiro Tsujimoto, Junichi Nagayoshi, Akio Iwai,
Yoshihiko Hirao and Eigorō Okajima

From the Department of Urology, Nara Medical University

A case of vitello intestinal cyst was reported. A 16-month-old girl was referred to our clinic with a complaint of a cystic mass in the region of the navel. With a diagnosis of urachal cyst, resection of the cyst was performed. Histopathologically, the cyst wall consisted of fibrous and fat tissue, and a small polypoid tumor which was found on the inner surface of the cyst was covered by intestinal epithelia. Pancreatic and gastric mucosal elements were observed in the submucosal layer. The histopathological diagnosis was vitello intestinal cyst. Serum amylase level elevated preoperatively normalized after removal of the cyst.

We collected 11 cases of vitello intestinal cyst reported in Japan including the present case. Ectopic pancreatic tissue is considered a characteristic of vitello intestinal cyst and that serum or fluid amylase level may be useful for differential diagnosis of the disease.

(Acta Urol. Jpn. 38: 81-84, 1992)

Key words: Vitello intestinal cyst, Ectopic pancreatic tissue, Amylase

緒 言

卵黄腸管嚢胞は小児の腹部腫瘍性疾患のなかでも非常に稀なもので、術前診断が困難な疾患の1つである。今回われわれは尿管嚢胞の術前診断にて摘出術を施行し、術後の病理組織学的検索により卵黄腸管嚢胞と診断した1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 1歳4カ月, 女児

主訴: 臍上部腫瘍

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし

在胎歴: 在胎中も特に異常なく、満期自然分娩にて出生、生下時体重は 2,655 g であった。

現病歴: 出生時、臍帯脱落不良で臍周辺部の軽度膨隆が持続していた。1986年4月、膨隆部の増大を認めため、近医にて切開排膿を受けたが、再度腫瘍が出現したため、同年7月1日、当院第1外科を受診した。臍ヘルニアの疑いにて経過観察していたところ、腫瘍

の一部が出血を伴って自壊し、さらに発熱、腫瘍の増大を認めたため、尿管嚢胞を否定しえず、同年12月22日、当科を紹介され受診した。

入院時現症: 栄養、発育状態良好。臍上方腹壁に、弾性軟で透光性、圧痛を有する 55×45 mm、高さ 25 mm の腫瘍を触知した (Fig. 1)。腫瘍の圧迫にて内容物の流出は認めなかった。

入院時検査: 血清アミラーゼ値 474 IU/l, CRP 0.4 mg/dl と軽度上昇を認めた以外、血液および尿所見に異常は認められなかった。

画像診断: 超音波断層検査にて腫瘍に一致して嚢胞を疑わせる 25×35×10 mm の「echo free」領域を認めたため、経皮的腫瘍穿刺を行ったところ約 60 ml の血性浸出液を採取した。続いて行った造影検査では、嚢胞の辺縁は不整で大きさは 50×50×38 mm であった。嚢胞と腸管との間に交通は認めなかった (Fig. 2)。なお、嚢胞内容物の細胞診は class II、細菌培養は陰性であった。その他、排泄性尿路造影、排尿時尿道膀胱造影では異常は認めなかった。

以上の所見より、尿膜管嚢胞の疑いにて、1988年3月22日、全身麻酔下で嚢胞摘出術を施行した。

手術所見：嚢胞上皮層に縦切開を加え嚢胞の剝離を行ったが、周囲組織との癒着が強く、操作中に嚢胞壁を一部破損した。嚢胞内部に直径約1cmの有茎性で表面平滑な結節状腫瘤を認めた (Fig. 3)。術中迅速病理検査では悪性所見は認められなかったが、腫瘤が臍と連続していたため、臍を含めて一塊として切除した。同時に周囲の検索を行ったが、尿膜管残存を思わ

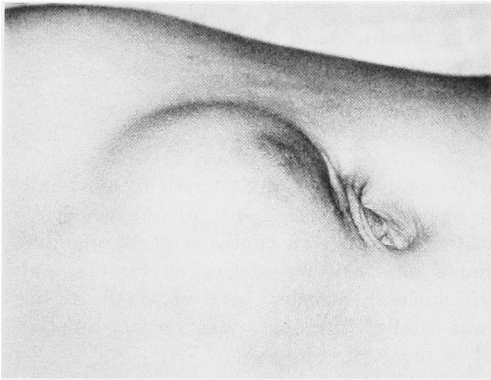


Fig. 1. Preoperative gross appearance of the abdomen.

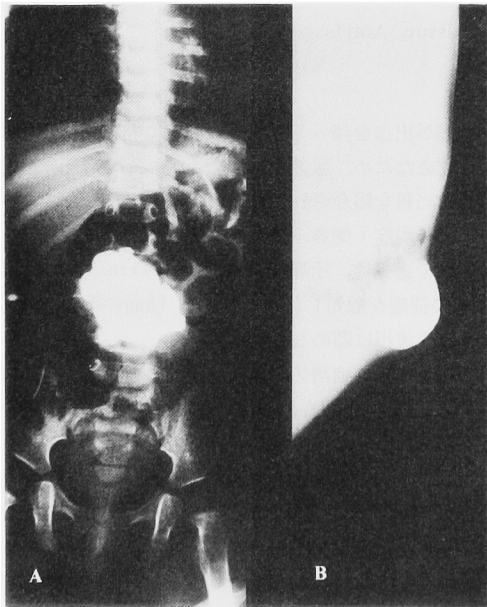


Fig. 2. Percutaneous cystography. (A: A-P view, B: Lateral view)

The contour of the inner wall of the cyst is irregular. There is no communication between the cyst and intestine.

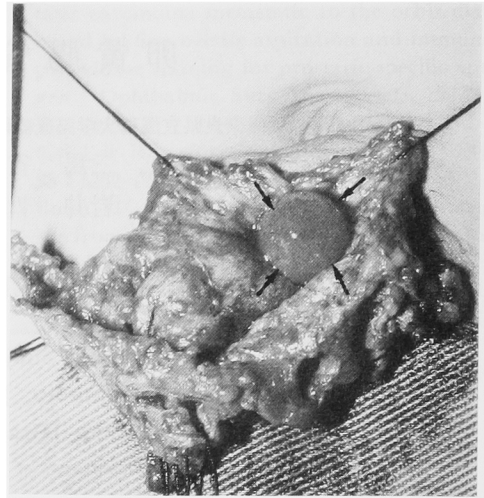


Fig. 3. Intraoperative photograph of the cyst. On the inner surface of the cyst, a polypoid tumor with a pedicle (arrows) is found.

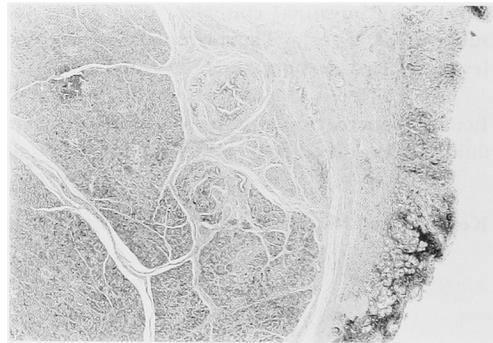


Fig. 4. Histopathological photograph of the polypoid tumor.

The polypoid tumor is covered by intestinal epithelium, in the submucosal layer of which pancreatic elements were observed. (H-E stain, $\times 25$)

せる索状物は認められなかった。

摘出標本所見 摘出標本の重量は10.7gで、嚢胞壁は結合織よりなり、内腔面は一部に出血が認められ、下端に直径約1cm、有茎性の表面平滑な結節状腫瘤を認めた。

病理組織学的には嚢胞壁は線維結合織と脂肪組織よりなり、上皮性組織は認められなかった。嚢胞内部に認められた腫瘤はパネート細胞を有する腸上皮で覆われ、粘膜下には膵組織を、また他の部位では胃底腺領域の粘膜組織を認めた (Fig. 4)。膵組織部はランゲルハンス島、腺房細胞および導管よりなる Heinrich の分類の I 型¹⁾であった (Fig. 5)。以上、腹壁内卵黄

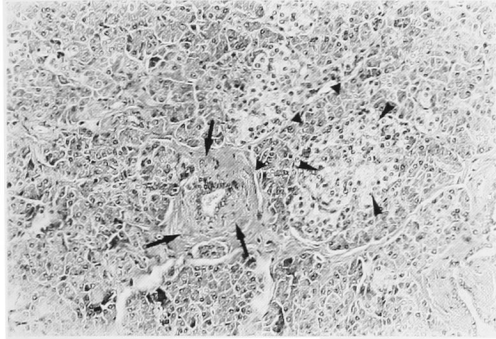


Fig. 5. High power magnification of the region of pancreatic tissue in Fig. 4.

The portion consists of Langerhans islets (arrow heads), acini (triangles) and ducts (arrows), classified as Type I of the Heinrich's classification. (H-E stain, ×75)

腸管嚢胞と診断した。

術後経過: 術後経過は良好で, 術前高値を示した血清アミラーゼは術後正常化した。現在, 外来にて経過観察中であるが, 嚢胞の再発は認めていない。

考 察

卵黄腸管嚢胞は卵黄腸管遺残の一型であるが, 卵黄腸管遺残は胎生期になんらかの原因により腸管と卵黄嚢を連絡する卵黄腸管の閉鎖が阻害されることにより生じるもので, Trimmingham²⁾は卵黄腸管遺残をTable 1のように分類している。その中ではメッケルの憩室が最も高頻度に見られ, 卵黄腸管嚢胞は非常

Table 1. Classification of congenital alimentary anomalies.

A. Completely patent omphalomesenteric duct (umbilical enteric fistula)	
B. Partially patent omphalomesenteric duct	
1. Peripheral portion	(umbilical sinus)
2. Intermediate portion	(vitelline cyst)
3. Enteric portion	(Meckel's diverticulum)
C. Mucosal remnant at the umbilicus (umbilical "polyp")	
D. Congenital band (obliterated omphalomesenteric duct)	

(Trimingham et. al.²⁾)

に稀なものである^{3,4)}。高橋ら⁴⁾によると, 卵黄腸管嚢胞は以下の2種類に分類される。すなわち, 全周が卵黄腸管遺残物からなる嚢胞と, 嚢胞壁の一部にのみ遺残物が存在し嚢胞自体は遺残物からの分泌物により形成されたと考えられる嚢胞である。自験例はこの後者にあたると思われる。

今回われわれは自験例も含め, 卵黄腸管嚢胞と考えられる明確な記載のある本邦報告11例を集計した⁴⁻¹³⁾(Table 2)。性別についてみると, Moore²²⁾は卵黄腸管奇形は男女同じ頻度で生じ, その症状発現において男性優位であると述べているが, 本邦報告例では男女比は5:6で性差はみられなかった。発症年齢は生後8日より48歳と広汎であるが, 成人例は11例中3例のみであり, 大多数は臍部の腫瘤形成のため乳幼児期に発見され観血的治療を受けている。本疾患の診断につ

Table 2. Cases of vitello intestinal cyst reported in Japan.

報告者	(年)	性	年齢	病 状	術前診断	治 療	組織所見
兼 広	(1959)	F	30y	下腹部痛, 嘔吐	虫垂炎	嚢胞摘出	筋組織, 漿膜間組織
岡	(1961)	M	30y	臍部痛, 嘔吐	?	嚢胞摘出	炎症像のみ
広 瀬	(1973)	F	8d	臍部腫瘍, 嘔吐	?	嚢胞摘出	炎症像, 上皮, 平滑筋
内 田	(1977)	F	48y	臍部腫瘍, 異常分泌	臍腸管嚢胞疑	嚢胞摘出	線維脂肪組織, 中皮
中 楚	(1977)	F	1y4m	臍部腫脹	臍ヘルニア	嚢胞摘出	壁: 扁平上皮 腫瘍: 臍組織*
藤 本	(1979)	M	1y2m	臍上部腫瘍	臍上部ヘルニア疑	?	腸粘膜上皮, 臍組織
木 村	(1982)	M	2y5m	臍部出血	卵黄嚢腫	嚢胞摘出	?
奥 芝	(1984)	M	1y4m	臍部腫瘍	卵黄腸管 or 尿管嚢腫	嚢胞摘出	腸上皮, 胃組織, 臍組織*
高 橋	(1984)	M	1y6m	臍周囲腫瘍	臍ヘルニア疑	嚢胞部分切除 腫瘍全摘	壁: 線維性肉芽 腫瘍: 小腸粘膜, 臍組織*
宮 本	(1987)	M	2y6m	臍部腫瘍	腹壁腫瘍	嚢胞摘出	回腸粘膜
自験例	(1991)	F	1y4m	臍上部腫瘍	尿管嚢胞疑	嚢胞摘出	壁: 線維脂肪組織 腫瘍: 腸上皮, 胃粘膜, 臍組織*

* Heinrich I型¹⁾ 臍組織

いては、Henderson ら¹⁴⁾は球形または卵型の臍周囲腫瘍で、外部からの圧迫により臍に皺がよることが卵黄腸管嚢胞の特徴であると述べているが、術前に卵黄腸管嚢胞を疑ったものは11例中3例のみであり、術前診断の難しさを物語っている。その他の術前診断は、臍ヘルニアの疑いが3例、尿管嚢胞の疑いが2例であり、これらの疾患と鑑別する必要がある。治療は手術療法が一般的で、記載のない1例を除き全例が嚢胞摘出を受けている。再発例の報告はないが、嚢胞切除が不完全の場合は再発の可能性が考えられる。

自験例では病理組織学的に異所性膵組織が認められたが、高橋ら⁴⁾は卵黄腸管嚢胞5例を集計し、その全例に異所性膵組織を認めたことより異所性膵組織の存在がこの疾患の特徴ではないかと述べている。異所性膵組織は発生学的には胎生期の膵原基の迷入によるとする説と、全小腸の内胚葉が副膵を形成する潜在能力を有するためこれらの細胞が組織内に迷入残存して発生するとする2つの説がある¹⁵⁾。異所性膵組織の発生部位は胃、十二指腸、空腸などに多くみられるが、まれに臍部に発生する¹⁶⁾。異所性膵組織の組織学的分類としては一般的に Heinrich の分類¹⁾が用いられるが、本症例に認められた膵組織は Heinrich I型であった。自験例では、術前に高値を示した血中アミラーゼ値が術後正常化した。異所性膵組織の関与が推察された。藤本ら¹⁰⁾は嚢腫内容の生化学検査にてアミラーゼ値が1,500 u と高値であったと報告している。自験例では残念ながら内溶液の生化学検査は行っていないが、嚢胞内溶液の検査が術前診断、鑑別診断の助けになる可能性があり、今後の検索が望まれる。

結 語

1歳4カ月の女兒にみられた卵黄腸管嚢胞の1例を報告した。病理組織検査にて異所性膵組織を認めたが、本疾患の本邦報告例において異所性膵組織の頻度は高い。自験例では術前高値を示した血中アミラーゼが術後正常化しており異所性膵組織の関与が推測された。本疾患は泌尿器科疾患では尿管嚢胞との鑑別診断が必要であるが、血中あるいは内容液中のアミラーゼ値が鑑別診断の助けになる可能性がある。

本論文の要旨は第125回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Heinrich H: Ein Beitrag zur Histologie des sogen. akzessorischen Pankreas. *Virv Arch Path Anat* **198**: 392-401, 1909
- 2) Trimmingham HL and McDonald JR. Congenital anomalies in the region of the umbilicus. *Surg Gynecol Obstet* **80**: 152-163, 1954
- 3) Moore TC: Omphalomesenteric duct anomalies. *Surg Gynecol Obstet* **103**: 569-580, 1956
- 4) 高橋 篤, 松山四郎, 鈴木則夫, ほか: 腹壁内卵黄腸管遺残の1例。一腹壁内卵黄腸管嚢胞の特殊型。日小外会誌 **23**: 102-108, 1987
- 5) 兼広正三, 生田東穂, 岸 忠雄, ほか: 虫垂炎と誤診せられた回結腸総腸管膿症, 卵黄管嚢腫, 限局性回腸炎の三者併発の1例。外科の領域 **7**: 559-560, 1959
- 6) 岡 益尚, 仮家達朗, 中田 健, ほか: 臍瘻の2治験例。日本臨床 **19**: 1403-1406, 1961
- 7) 広瀬周平, 片岡和男, 北村元雄, ほか: 腸閉塞症状を合併した未熟児の卵黄管嚢胞の1例。岡山済生会総合病院雑誌 **5**: 43-46, 1973
- 8) 内田道男, 岩佐 裕, 根本浩介: 臍腸管退化不全による奇形病変の2例。外科診療 **16**: 269-273, 1974
- 9) 中楚 肇, 成田尚良, 馬淵 晟: 臍ヘルニアを思わせた腹壁迷入臍の1例。小児外科 **9**: 289-292, 1977
- 10) 藤本宗平, 黒沢輝司, 山本 弘, ほか: 卵黄腸管嚢腫の1例。日小外会誌 **15**: 663, 1979
- 11) 木村絃一朗, 高橋茂樹, 小山富雄, ほか: 臍腸管嚢腫の1例。日臨外医会誌 **43**: 705, 1982
- 12) 奥芝俊一, 児島哲文, 木戸康文, ほか: 腹壁内卵黄腸管嚢腫の1例。小児外科 **16**: 1385-1389, 1984
- 13) 宮本勝也, 古田靖彦, 向井省吾: 臍腸管遺残12例の治療経験。日小外会誌 **23**: 1048-1055, 1987
- 14) Henderson KC and Torch EM: Differential diagnosis of abdominal masses in the neonate. *Pediatr Clin North Am* **24**: 557-578, 1977
- 15) 廣田映五, 下田忠和: 11. 胃, 2. 形成異常。外科病理学, 石川栄生, 牛島 宥, 遠城寺宗知編。第1版, pp. 323-329, 文光堂, 東京, 1984
- 16) de Castro Barbosa JJ, Dockerty MB and Waugh JM: Pancreatic heterotopia, *Surg Gynecol Obstet* **82**: 527-542, 1946

(Received on February 22, 1991)
(Accepted on May 15, 1991)