

症例報告**Peutz-Jeghers型空腸ポリープに起因した腸重積に対して腹腔鏡補助下小腸部分切除術を施行した1例**

品田花絵*, 神津慶多**, 辻本広紀**, 平木修一**, 矢口義久**, 高畑りさ**,
熊野 勲**, 中西邦昭***, 長谷和生**, 上野秀樹**

防医大誌 (2019) 44 (2) : 80-84

要旨:【緒言】 Peutz-Jeghers型ポリープ (PJP) はPeutz-Jeghers症候群 (PJS) と同様に過誤腫性ポリープであるが, PJSと異なり孤立性で, 皮膚・口唇の色素沈着や常染色体優性遺伝の特徴を欠く比較的稀な疾患である。今回我々は, 小腸に生じたPJPに起因する腸重積に対して腹腔鏡補助下小腸部分切除術を施行した1例を経験したので報告する。

【症例】 50歳代の女性。1年前の定期検診で貧血を指摘され, 便潜血が陽性であったため精査目的に近医を受診した。上部及び下部消化管内視鏡検査を施行されたものの出血源は明らかでなく, 小腸精査のため当院に紹介された。来院時, 身体所見には特記すべき所見を認めなかった。小腸内視鏡検査でTreitz靱帯から約35cm肛門側の部位に40mm大の腫瘍性病変を認め, 生検で過誤腫の診断を得た。小腸造影で同部位に腫瘍を先進部とする腸重積を認めたため, 腸重積を伴う小腸過誤腫の診断で腹腔鏡補助下小腸部分切除術を行った。手術時に腸重積は自然解除されていたが術前施行した点墨部位に腫瘍を確認した。病理組織診断は過誤腫性ポリープ (Peutz-Jeghers型) で, 悪性所見は認めなかった。術後第5病日に合併症なく軽快退院し, その後貧血の改善が認められた。

【結語】 腸重積を伴うPJPに対して腹腔鏡補助下小腸部分切除術を施行した1例を経験した。手術時に腸重積は自然解除されていたが, 術前点墨により部位の同定が容易であった。

索引用語: 小腸腫瘍 / Peutz-Jeghers型ポリープ / Peutz-Jeghers症候群 / 腹腔鏡手術

緒言

Peutz-Jeghers型ポリープ (PJP) はPeutz-Jeghers症候群 (PJS) と同様に過誤腫性ポリープであるが, PJSと異なり孤立性で, 皮膚・口唇の色素沈着や常染色体優性遺伝の特徴を欠く, 比較的稀な疾患である。PJPはその発生機序や悪性化する頻度については不明な点が多く, 治療方針については一定の見解がないものの, ポリープを先進部とした腸重積を合併した場合には, 緊急手術となることが多い。今回我々は, PJPに

起因する腸重積に対して腹腔鏡補助下小腸部分切除術を施行した1例を経験したので報告する。

症例

症例: 50歳代女性。

現病歴: 1年前から定期検診で鉄欠乏性貧血を指摘され鉄剤を処方されていた。検診で便潜血陽性を指摘されたため近医を受診し, 上部及び下部消化管内視鏡検査を施行されたが出血源は明らかでなく, 小腸の精査のために当院に紹

*防衛医科大学校研修医官
Resident, National Defense Medical College, Tokorozawa, Saitama 359-8513, Japan

**防衛医科大学校外科学講座
Department of Surgery, National Defense Medical College, Tokorozawa, Saitama 359-8513, Japan

***防衛医科大学校臨床検査医学講座
Department of Pathology and Laboratory Medicine, National Defense, Medical College, Tokorozawa, Saitama 359-8513, Japan

平成30年12月11日受付
平成31年2月26日受理

介となった。

既往歴：特記事項なし。

生活歴：特記事項なし。

家族歴：父が胃癌，肝臓癌。

身体所見：皮膚，口唇，口腔粘膜に色素沈着を認めなかった。腹部は平坦・軟で圧痛はなかった。

血液検査：Hb 9.9g/dLと貧血を認めた。腫瘍マーカーはCEA，CYFRA，SCCのいずれも正常範囲内であった。

小腸造影検査：(図1) Treitz靭帯から約30cm遠位側の空腸に長径35mmの有茎性の隆起性病変が存在し，同部位を先進部とする腸重積の所見を認めた。

小腸内視鏡検査：(図2) ダブルバルーン内視鏡では，同部位の空腸に分葉多結節状の有茎性腫瘍を認め，生検の結果，過誤腫の診断を得た。同部位に点墨を行った。カプセル内視鏡検査による観察では，その他の病変は認められなかった。

造影CT：(図3) 近位空腸に40mm大の腫瘤性病変を認め，これに連続する腸管が同心円状構造を呈しており腸重積が疑われた。その他の異常所見は認めなかった。

臨床経過：貧血や便潜血の原因として空腸の隆起性病変が考えられ，またCTで腸重積が疑

われた。小腸過誤腫による腸重積の診断で手術の方針とし，腹腔鏡補助下小腸部分切除術を施行した。仰臥位，全身麻酔下で手術を開始した。腹腔内を観察すると，すでに腸重積は解除されていたが，Treitz靭帯から約30cmの空腸に術前に施行した点墨を認め，同部位を臍部創から体外に導出した。触診で腫瘍を確認し，腫瘍部を含む約10cmの空腸を切除した。手術時間は1時間44分，出血量は6gであった。病理組織検査では，粘膜上皮が粘膜筋板を軸に樹枝状に過形成し，大小の管状および乳頭状に増殖した過誤腫性ポリープ (Peutz-Jeghers型) の所見であ

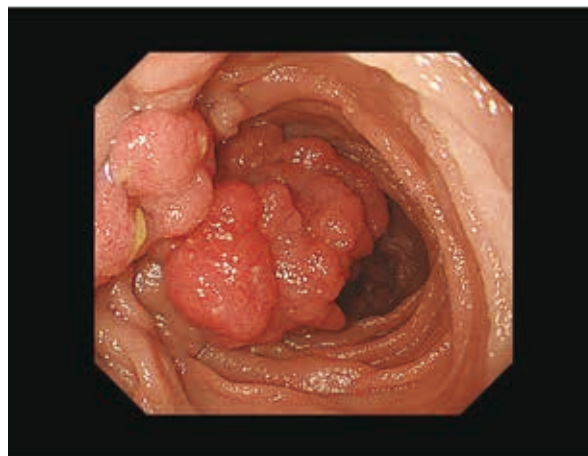


図2. 小腸内視鏡検査：Treitz靭帯から約30cm遠位側の空腸に分葉多結節状の有茎性腫瘍を認めた。

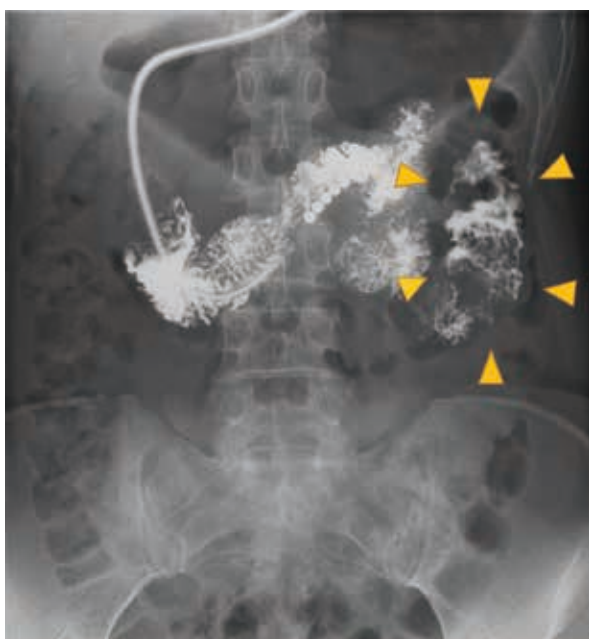


図1. 小腸造影検査：Treitz靭帯から約30cm遠位側の空腸に長径35mmの有茎性病変を認めた (矢頭)。

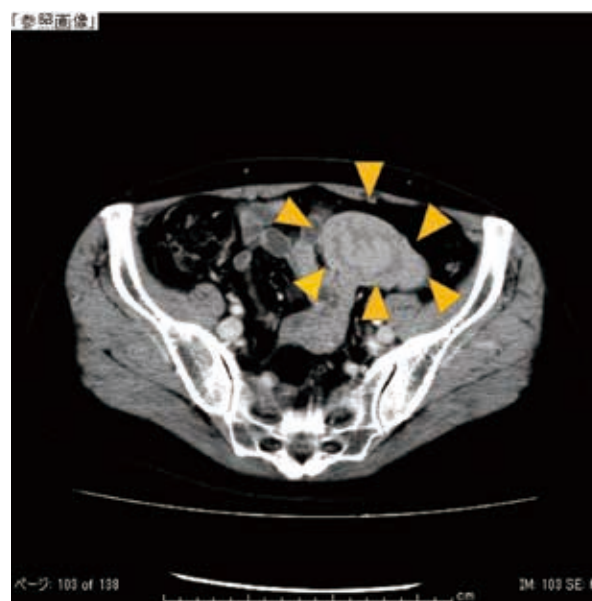


図3. 造影CT：近位空腸に40mm大の腫瘤性病変と，これに連続する腸管に同心円状構造を認めた (矢頭)。

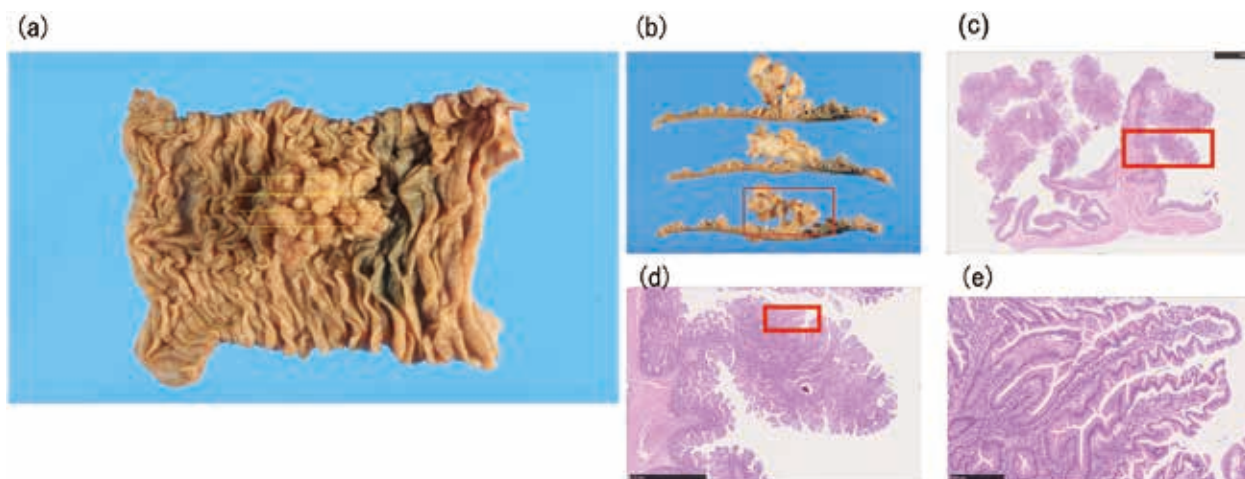


図4. 病理組織検査：(a) 検体標本。40mm大の腫瘍を認めた。漿膜面は平滑であった。(b) 腫瘍断面。(c) 弱拡大。(d) 弱拡大。(e) 粘膜上皮が粘膜筋板を軸に樹枝状に過形成し、大小の管状、一部で乳頭状に増生しており、過誤腫性ポリープ（Peutz-Jeghers型）の所見であった。悪性所見は認めなかった。

表1.

No.	Author	Year	Age	Sex	Chief complaints	Location	size(mm)	Stalk	Intussusception	serosa	Therapy
1	Matsunaga	1998	67	M	tarry stool	jejunum	20	+	-	Not referred	polypectomy
2	Yokota	2001	53	M	none	duodenum	16	+	-	Not referred	polypectomy
3	Anbo	2001	25	F	stomachache	jejunum	33	+	+	Not referred	laparotomy
4	Ishibashi	2002	23	F	stomachache	jejunum	46	+	+	dimple	laparoscopic surgery
5	Ogiya	2003	25	F	stomachache	jejunum	35	+	+	necrosis	laparotomy
6	Kitaoka	2003	10	M	stomachache, vomiting	jejunum	30	+	+	Not referred	laparotomy
7	Aso	2008	32	M	stomachache, vomiting	jejunum	40	+	+	necrosis	laparotomy
8	Otake	2009	2	F	anemia	ileum	20	+	-	Not referred	laparotomy
9	Oda	2009	29	F	stomachache, vomiting	ileum	30	+	+	dimple	laparoscopic surgery
10	Kim	2009	50	M	tarry stool	duodenum	20	+	-	smooth	laparotomy
11	Sugano	2011	19	M	vomiting	jejunum	30	Not referred	+	dimple	laparoscopic surgery
12	Fumimoto	2011	44	M	none	jejunum	23	+	+	dimple	laparoscopic surgery
13	Kobayashi	2012	58	F	tarry stool	duodenum	30	+	-	Not referred	polypectomy
14	Endo	2014	67	F	none	duodenum	35	+	-	Not referred	polypectomy
15	Iguchi	2014	45	F	stomachache, vomiting	ileum	35	Not referred	+	Not referred	laparoscopic surgery
16	Yamamoto	2015	52	M	difficulty in swallowing	stomach	50	-	-	Not referred	laparoscopic surgery
17	Suzuki	2014	9	M	malaise	jejunum	20	+	+	dimple	laparoscopic surgery
18	Kitayama	2015	27	F	stomachache	jejunum	45	Not referred	+	Not referred	laparoscopic surgery
19	Takahashi	2016	27	F	stomachache, vomiting	jejunum	60,20,15	Not referred	+	inflammation	laparotomy
20	Yamazaki	2017	50	M	tarry stool	duodenum	30	-	-	Not referred	laparotomy
21	Ours	2017	52	F	none	jejunum	40	+	+	smooth	laparoscopic surgery

り、悪性所見を認めなかった（図4）。術後良好に経過し、第5病日に退院した。外来通院で、貧血の改善を確認した。

考 察

Peutz-Jeghers型ポリープ（PJP）は食道以外の全消化管に発生するとされており、その頻度は小腸が77.9%、大腸が17.6%、胃が4.5%と小腸に多く見られると報告されている¹⁾。PJSでは1~3.8%が癌化し、腺腫を含む腫瘍性病変が3.2~9.2%に発生する²⁾。一方でPJPは基本的には非腺腫性の過誤腫性ポリープであるとされるが、ポリープ内に癌成分を伴っていた³⁾、あ

るいはPJPにおいても遺伝素因の関連性を指摘した報告もあり⁴⁾、PJPの発癌リスクについては不明な点が多い。そのため詳細な術前検査や生検により、ポリープの数や良悪性について評価した上で、外科治療を行う場合には病態を考慮した過不足のない切除範囲を決定する必要がある。

PJPでは、しばしば腸重積を合併することが報告されており、緊急手術となる例も少なくない。医学中央雑誌において1986年から2017年までで「Peutz-Jeghers型ポリープ」（解説、会議録を除く）で検索したところ、自験例を含め21例の報告を認めた（表1^{5,6,8-27)}）。男性10例、

女性11例と性差は認めず、年齢は2～67歳（平均36.4歳）であった。発見契機は45%が腹痛と最も多く、次に腫瘍からの出血による血便や便潜血であった。無症状で発見されも、短期間で増大傾向にあり治療適応とされた症例もあった⁵⁾。

腫瘍が有茎性であったものは15例（75%）であり、13例（65%）は腸重積を合併していた。腫瘍の局在は15例（75%）が小腸で、次いで十二指腸が5例、胃が1例であった。治療は腸重積がなく有茎性の症例（4例）に関しては、内視鏡的治療が選択されていた。開腹手術が選択された症例では、腸重積による腸閉塞を呈した症例が多く⁶⁻¹⁰⁾、2011年以降は腹腔鏡下手術の報告が多かった。

術中所見で腸重積が解除されていた症例は本例と併せて2例のみであった。そのうち1例は腫瘍径が20mmの症例であったが、腫瘍部の漿膜面にえくぼ状のひきつれがあり腫瘍位置を同定することができた¹¹⁾。腫瘍部の漿膜にひきつれなどの所見を認める場合には腫瘍の同定が容易であるが^{10, 12-16)}、腹腔鏡手術では全小腸を触診できない可能性があり、本症例のように術前に点墨するなど、腫瘍部位を同定する手段を講じることが望ましいと考えられた。

結 語

PJPに起因する腸重積に対して腹腔鏡下小腸部分切除術を施行した1例を経験した。このような症例に対して腹腔鏡手術を選択する場合には、術前の点墨などの腫瘍部位のマーキングが適切な切除部位の決定に有用であると考えられた。

利益相反

本論文の発表に関連し、開示すべきCOI関係にある企業などはありません。

文 献

- 1) 須田武保, 大竹雅広, 佐々木正貴: Peutz-Jeghers症候群—Peutz-Jeghersポリープの対応—. 歯学 93: 114-118, 2006.
- 2) 須田武保, 渡辺英伸, 畠山勝義, 武藤輝一: 特殊な消化管ポリープ (2) Peutz-Jeghers症候群. 臨床科学 24: 332-340, 1988.
- 3) 沼賀有紀, 大矢敏裕, 高橋憲史, 清水 尚, 長谷

- 川剛, 竹吉 泉: 虫垂に発生したPeutz-Jeghers型ポリープの1例. 日本臨床外科医学会雑誌 73: 2886-2891, 2012.
- 4) 半田祐一, 増田多恵子, 田所美佳: 腺腫成分を合併した大腸単発性Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 埼玉県医学会雑誌 24: 1476-1478, 1990.
- 5) 遠藤佑香, 藤原 崇, 林 星舟, 小泉理美, 岩崎 将, 千葉和朗, 來間佐和子, 桑田 剛, 江頭秀人, 小泉浩一, 神澤輝実, 田畑拓久, 藤原純子, 荒川丈夫, 門馬久美子, 堀口慎一郎: 内視鏡的切除を行なった十二指腸Peutz-Jeghers型ポリープの1例. *Progress of Digestive Endoscopy* 84: 118-119, 2014.
- 6) 安保智典, 今村哲理, 森 孝之, 能正勝彦, 萩原 武, 黒河 聖, 本谷 聡, 栃原正博, 村岡俊二: 空腸Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 胃と腸36: 971-974, 2001.
- 7) 萩谷朗子, 板東隆文, 古畑善章, 酒井敬介, 磯山 徹: Peutz-Jeghers型ポリープを合併した成人逆行性小腸重積症の1例. 日本臨床外科医学会雑誌 64: 1916-1919, 2003.
- 8) 北岡文生, 塩竈利明, 水谷明正, 鶴長泰隆, 福井 洋, 田口 尚: 腸重積にて発症した小児孤立性Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 長崎医学会雑誌 78: 12-15, 2003.
- 9) 朝生 浩, 三松謙司, 川崎篤史, 久保井洋一, 加納久雄, 大井田尚継: Peutz-Jeghers型ポリープによる成人腸重積症の1例. 日大医学雑誌 67: 242-245, 2008.
- 10) 高橋慶太, 藤崎宗春, 梶沙友里, 小郷桃子, 篠原万里枝, 谷田部沙織, 藤田明彦, 金井秀樹, 篠原寿彦, 羽生信義: Peutz-Jeghers型ポリープにより小腸重積きたした1例. 日本外科系学会連会誌 41: 221-226, 2016.
- 11) 山崎健路, 山内貴裕, 九嶋亮治, 岩田 仁, 仁田豊生, 河合雅彦, 國枝克行, 山下晃司, 市川広直, 佐竹智行, 中西孝之, 永野淳二, 安藤暢洋, 杉原潤一, 荒木寛司, 清水雅仁: 微小瘤が並存し内反性発育した孤立性十二指腸Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 胃と腸 52: 1610-9, 2017.
- 12) 石橋里絵, 曾我部豊志, 六車一哉, 奥野匡宥, 酒田宗博, 小林正夫, 湯川永洋, 高島澄夫, 辻本正彦: 腸重積を繰り返した腹腔鏡下手術にて切除した小腸不全型Peutz-Jeghers症候群の1例. 日本消化器外科学会雑誌 35: 1521-1525, 2002.
- 13) 小田晃弘, 衛藤 謙, 小菅 誠, 石山 哲, 林 武徳, 渡部篤史, 小林徹也, 小川匡市, 柏木秀幸, 矢永勝彦. 腸重積で発症し、腹腔鏡補助下切除を施行した小腸不全型Peutz-Jeghers症候群の1例. 日本腹部救急医学会雑誌 29: 513-516, 2009.
- 14) 菅野雅彦, 福永正氣, 勝野剛太郎, 伊藤嘉智, 大内昌和, 吉川征一郎, 飯田義人, 永坂邦彦, 李慶文, 津村秀憲: 逆行性腸重積症を呈した空腸Peutz-Jeghers型ポリープに対し腹腔鏡下手術を施行した1例. 日本消化器外科学会雑誌 44: 304-310, 2011.
- 15) 文元雄一, 五味久仁子, 中川 朋: 小腸過誤腫を先進部とした無症候性成人腸重積症の1例. 外科治療 11: 518-521, 2011.
- 16) 鈴木啓介, 古村 眞, 寺脇 幹, 小高哲郎, 佐竹亮介, 池袋賢一, 米川浩伸, 菊地 淳, 佐々木惇, 川嶋 寛: 腹腔鏡による検索が有用であった小腸

- Peutz-Jeghers型ポリープによる腸重積症の1例. 日本小児外科学会雑誌 50: 1048-1052, 2014.
- 17) Oncel, M., Remzi, F.H., Church, J.M., Goldblum, J.R., Zutshi, M. and Fazio, V.W.: Course and follow-up of solitary Peutz-Jegheres polyps: a case series. *Int. J. Colorectal Dis.* 18: 33-34, 2003.
- 18) 小林知樹, 桑井寿雄, 木村治紀, 山本宗平, 榎木慶一, 平田真由子, 山口 厚, 河野博孝, 倉岡和矢, 谷山清己, 高野弘嗣: 消化管出血を契機に発見され, バルーン小腸鏡にて切除した十二指腸孤立性Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 日本消化器内視鏡学会雑誌 54: 2014-2021, 2012.
- 19) 山本 篤, 山下好人, 吉井真美, 森本純也, 日月亜紀子, 玉森 豊, 清水貞利, 井上 透, 金沢景繁, 西口幸雄: 不完全型Peutz-Jeghers症候群における多発性Peutz-Jeghers型胃ポリープから発生した多発性胃癌の1例. 日本消化器外科学会雑誌 49:1199-1205, 2016.
- 20) 大竹耕平, 内田恵一, 井上幹大, 小池勇樹, 藤川裕之, 三木誓雄, 楠 正人: 回腸単発性Peutz-Jeghers型ポリープの1小児例. 日本小児外科学会雑誌 45: 53-57, 2009.
- 21) 松永典子, 浜本哲郎, 大久保美智子: 内視鏡的に切除した空腸Peutz-Jeghers型過誤腫性ポリープ(不全型Peutz-Jeghers症候群)の1例. 日本消化器内視鏡学会雑誌 40: 686-691, 1998.
- 22) 横田智行, 松井秀隆, 曾我美子, 小林雄一, 梶原猛史, 井内英人, 二宮朋之, 道堯浩二郎, 堀池典生, 恩地森一: 十二指腸球部の孤立性Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 日本消化器内視鏡学会雑誌 43: 2225-2230, 2001.
- 23) 金 玆志, 西条寛平, 瀬尾 充, 松浦隆志, 一宮 仁, 相島慎一, 松本主之, 飯田三雄. 消化管出血を契機に発見された広基性十二指腸孤立性Peutz-Jeghers型ポリープの1例. 日本消化器内視鏡学会雑誌 51: 1431-1436, 2009.
- 24) 井口健太, 渡邊 純, 本間祐樹, 茂垣雅俊, 舛井秀宣, 長堀 薫: 術前に腸重積を修復し単孔式腹腔鏡手術を行ったPeutz-Jeghers型ポリープの1例. 日本臨床外科学会雑誌 75: 2214-2218, 2014.
- 25) 北川浩樹, 上神慎之介, 清水 亘, 渡谷祐介, 繁本憲文, 末田泰二郎: 内視鏡的ポリープ切除を併用したPeutz-Jeghers症候群開腹手術の1例. 日本臨床外科学会雑誌 75: 2219-2223, 2014.
- 26) 北山佳弘, 杉本武巳, 余田洋右, 岡本信洋: 成人腸重積症にて発見されたPeutz-Jeghers型ポリープの1例. 兵庫県医師会医学雑誌 58: 74-77, 2015.
- 27) 川井啓市, 竹本忠良, 平塚秀雄, 大井 至, 多田正大: 小腸腫瘍に対する内視鏡診断の現況. 胃と腸 16: 991-997, 1981.

Laparoscopic resection of a jejunal intussusception associated with Peutz-Jeghers polyp: A case report

Hanae SHINADA*, Keita KOUZU**, Hironori TSUJIMOTO**, Shuichi HIRAKI**, Yoshihisa YAGUCHI**, Risa TAKAHATA**, Isao KUMANO**, Kuniaki NAKANISHI***, Kazuo HASE** and Hideki UENO**

J. Natl. Def. Med. Coll. (2019) 44 (2) : 80–84

Abstract: Peutz-Jeghers polyps (PJPs) and Peutz-Jeghers syndrome (PJS) are pathologically similar to hyperplastic polyps. However, PJPs lack three characteristic findings of PJS: skin and oral pigmentation, autosomal dominant inheritance, and gastrointestinal polyposis. The incidence of PJPs is relatively rare (1 in 150,000) and it often causes intussusception. Herein, we report the case of a patient with PJP managed laparoscopically after endoscopic ink-injection. A 52-year-old woman with anemia and fecal occult blood testing that was positive for a year consulted her medical practitioner. Gastrointestinal endoscopy did not show any remarkable findings so she was referred to our hospital for further evaluation. She had no evidence of skin or oral pigmentation. Small intestinal endoscopies revealed a 40-mm tumor and intussusception at a site 35 cm from the ligament of Treitz. Biopsy demonstrated a hamartomatous polyp, and there was ink injected. The tumor was resected laparoscopically. Pathological findings of the resected specimen were consistent with PJPs. The patient's postoperative course was uneventful. Her anemia resolved and she was discharged on postoperative day 5. In this case, intussusception was reduced at the operation, but preoperative endoscopic ink-injection could make it easy to identify the tumor.

Key words: Peutz-Jeghers polyp / Peutz-Jeghers syndrome / intussusception / laparoscopic surgery