

症例報告

直腸絨毛腫瘍により意識障害を来たした1例

高本 淳¹⁾, 安井 應紀²⁾, 佐藤 眞²⁾,
佐藤 裕太¹⁾, 安田 修¹⁾, 松田 健一¹⁾,
鎌田 敦志³⁾

要 約

83歳女性。低Na血症による意識障害を繰り返すことにより当院に入院した。頭部に異常を認めず。入院後、血液を混ざる大量の透明粘液便を指摘された。下部消化管内視鏡検査を行ったところ、下部直腸に大量の粘液分泌を伴う絨毛腫瘍を認め、低Na血症の原因と考えられた。手術は経肛門的腫瘍切除術を施行した。切除標本の病理組織診は tubular adenocarcinoma in tubulovillous adenoma であった。術後、意識障害は改善した。

(キーワード：絨毛腫瘍、意識障害、電解質喪失症候群)

I はじめに

絨毛腫瘍は肉眼的に絨毛状の所見を呈す大腸腺腫の一種である。時として大量の粘液分泌による下痢によって、脱水や電解質異常を来し、意識障害にまで至る電解質喪失症候群 (Electrolyte depletion syndrome; EDS) を呈す。今回我々は、EDS を呈した直腸絨毛腫瘍の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

II 症例

患者：83歳、女性。

主訴：意識障害。

既往歴：51歳より狭心症、高血圧、高脂血症で加療中。

現病歴：平成20年10月3日に意識障害 (JCS 100) にて当院へ救急搬送された。低Na血症、低K血症および血清尿素窒素、血清クレアチニンの上昇を認めたため、脱水に伴う急性腎不全を疑い加療目的に入院した。入院後に頭部CT、上腹部CT、上腹部MRI、上部内視鏡検査などを施行したが、意識障害の原因となりうる

異常は認めず、補液のみで改善し、退院した。平成21年1月より食欲低下を認め、1月19日当院内科を受診。採血にて前回入院時と同様の所見を認め、入院したが、頭部MRIで異常を認めず、補液で改善し退院した。2月6日、意識障害 (JCS3) が出現し、当院受診。低Na血症、低Cl血症および血清尿素窒素、血清クレアチニンの上昇を認めたため、精査加療目的に入院した。

入院時現症：身長144cm、体重36kg、体温36.9℃、血圧137/85 mmHg、脈拍54/min、理学所見で胸腹部に異常所見なし。肛門より一部血液を混ざる大量の透明粘液便の排泄を認めた。直腸診では、下部直腸内に柔らかい絨毛状形態を呈す腫瘍が占拠しており、大量の粘液を分泌していた。肛門縁と腫瘍下縁との距離は約4cmであった。

入院時検査所見 (表1)：低Na血症、低Cl血症 および血清尿素窒素、血清クレアチニンの上昇を認めた。

1) 羽後町立羽後病院内科

2) 同外科

3) 同消化器科

表1 入院時検査所見

【血算】	【生化学】	【腫瘍マーカー】
WBC 10500 / μ l	TP 8.2 g/dl	CEA 2.79 ng/ml
Neut. 85.8 %	Alb 4.8 g/dl	CA19-9 0.00 U/ml
Eos. 0.1 %	BUN 137.5 mg/dl	
Mono. 1.2 %	Cr 6.17 mg/dl	
Baso. 0.0 %	Na 124 mmol/l	
Lymp. 12.9 %	K 4.1 mmol/l	
RBC 4.40×10^4 / μ l	C l 73 mmol/l	
Hb 13.9 g/dl	AST 12 IU/l	
Ht 42.4 %	ALT 9 IU/l	
Plt 37.3×10^4 / μ l	LDH 134 IU/l	
	CK 67 IU/l	
	γ -GTP 22 IU/l	
	ALP 286 IU/l	
	CRP 2.52 mg/dl	

図1 腹部造影CT：直腸内に突出し、造影効果を有する約10cm大の絨毛状腫瘍を認めた。

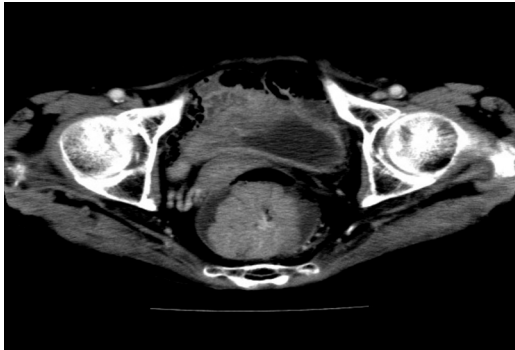
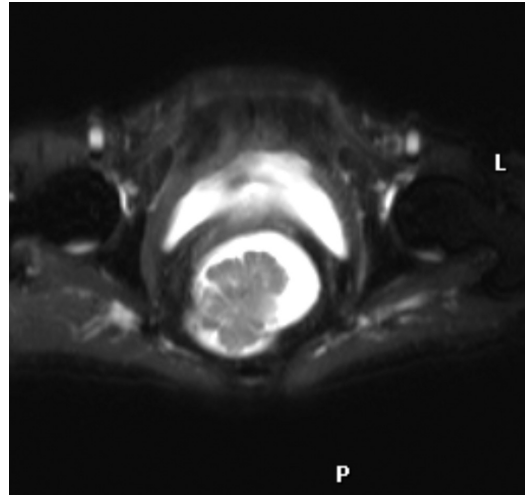


図2 下部消化管内視鏡検査：肛門縁より約4 cmの下部直腸に、大きさ10cm大の絨毛状形態を呈す有茎性腫瘍が直腸内腔を占拠するように存在していた。その形態より絨毛腫瘍と診断した。生検では tubulovillous adenoma の診断であった。

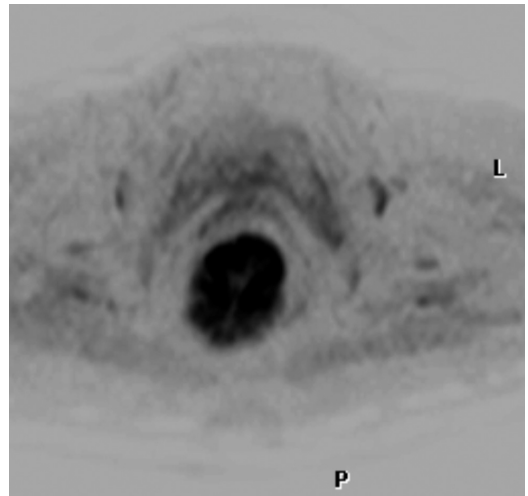


図3 腹部MRI検査（A：T2強調画像、B：拡散強調画像）：T2強調画像で直腸内に突出する約10cm大の絨毛状の腫瘍を認め、またその周囲は高信号を呈していた。深達度は粘膜層までと考えられた（A）。拡散強調画像では直腸内に高信号を呈す腫瘍として認めた（B）。

(A)



(B)

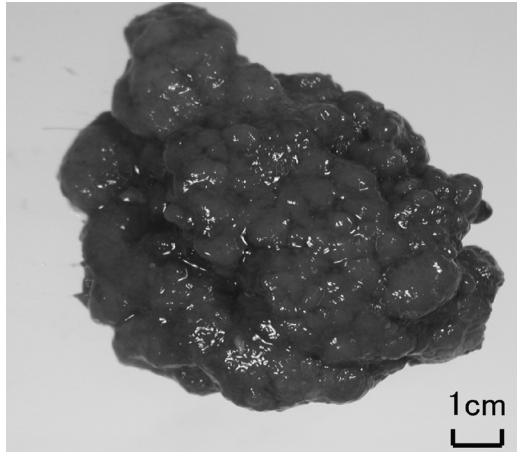


下部消化管造影：腫瘍は肛門縁よりすぐの下部直腸に、大きさ約10cmの絨毛状発育を呈す腫瘍として認めた。

以上の検査所見より、直腸絨毛腫瘍と診断した。腫瘍が約10cm大と大きかったことより、内視鏡的切除は困難と判断した。また、術中所

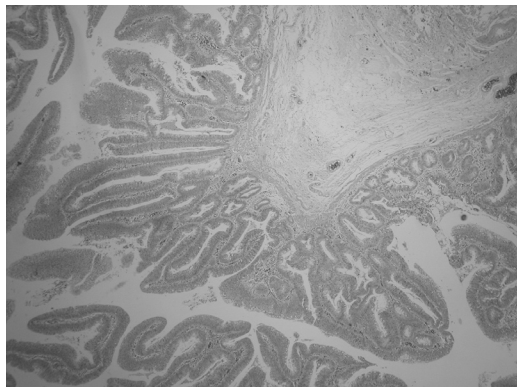
見より肛門縁から約8cmの部分に腫瘍茎を確
認できたことより経肛門的腫瘍切除術を選択
し、平成21年4月14日に施行した。

図4 切除標本所見：約10cm大の有茎性で乳
頭状の柔らかい腫瘍であった。

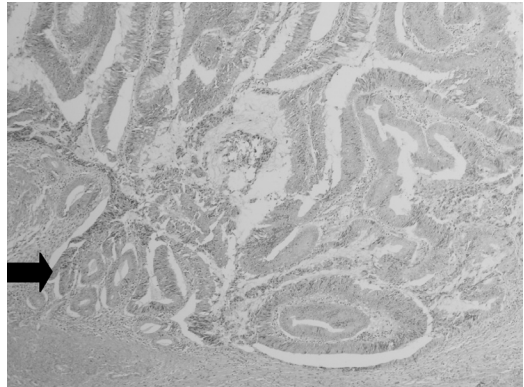


**図5 病理組織像 (A : H.E. 染色×4、B :
E -MT 染色×20)**：絨毛構造を呈している
(A)。一部に核異型を認め、tubular adenocarcinoma
in tubulovillous adenomaの診断で、深達度は
sm1, ly0, v0であった。矢印部で粘膜筋板が一
部断裂しており、粘膜下層への浸潤を認めた
(B)。

(A)



(B)



臨床経過：術後経過は良好で、現在粘液便や
電解質異常の再発は認めていない。

III 考察

大腸絨毛腫瘍は、大腸腺腫の1.3~5.6%を占
める比較的稀な疾患である¹⁾。本疾患は、肉眼
的に絨毛状の所見を呈する絨毛腺腫あるいは
腺管絨毛腺腫と定義づけられている²⁾。粘液を
分泌するという特徴があり、時として脱水や
電解質喪失を来し、急性腎不全や意識障害
を起こすことがある。これは電解質喪失症候
群 (Electrolyte depletion syndrome; EDS) と称
され、大腸絨毛腫瘍の約2%に認められる稀
な病態である⁸⁾。医学中央雑誌にて、1984年か
ら2010年までの期間において「大腸」「絨毛腫
瘍」「電解質異常」のキーワードで渉猟しえた
限りでは13例の論文報告があるのみであった。
自験例を含めた14例を検討すると、平均年齢は
71.5歳、男女比は4 : 3、主訴は下痢が最も多
く (71.4%)、平均病悩期間は38.1ヶ月であっ
た。平均腫瘍径は15.2cmで、腫瘍の局在部位
は92.9%が直腸であり、S状結腸は1例のみで
あった (表2)。高齢であり病悩期間が比較的
長いこと、腫瘍径が大きく直腸に好発するな
どの点で、今回の我々の検討でも既報に合致す
る結果であった⁹⁾。

一般的に本疾患の悪性度は低いが、高率に癌
を合併するとされている。また、腫瘍径と深達
度に相関関係は認めないとされていて、原岡ら¹⁵⁾
は癌を伴った場合の深達度は67%が粘膜層ま

表2 本邦における電解質異常を来した大腸絨毛腫瘍の症例

症例	年齢	性別	主訴	病恹期間	腫瘍径 (cm)	部位	癌合併	深達度	治療	転帰	報告者
1	83	男	下痢	2年間	15	直腸	あり	sm	手術	生存	八杉ら ¹⁾
2	83	女	粘液便、食欲低下	不詳	18.5	直腸	なし	—	手術	生存	高久ら ³⁾
3	62	男	下痢、嘔気	1ヶ月間	15	直腸	—	—	—	他病死	石橋ら ⁴⁾
4	76	男	下痢、嘔気	1ヶ月間	15	S状結腸	あり	sm	手術	生存	山本ら ⁵⁾
5	73	女	食欲不振	10日間	8.5	直腸	あり	m	手術	生存	安田ら ⁶⁾
6	72	男	下痢、嘔吐	2週間	14	直腸	あり	m	手術	生存	石井ら ⁷⁾
7	77	男	下痢	不詳	18	直腸	あり	—	手術	生存	赤澤ら ⁸⁾
8	65	女	粘液便、下血	2年間	15	直腸	あり	m	手術	生存	山下ら ⁹⁾
9	74	男	下痢	7年間	18	直腸	あり	m	手術、化学療法	再発生存	大田ら ¹⁰⁾
10	65	男	血便、体重減少	6ヶ月間	11.4	直腸	あり	m	手術	生存	野中ら ¹¹⁾
11	75	女	下痢	15年間	14	直腸	あり	m	手術	生存	山根ら ¹²⁾
12	55	男	下痢	10年間	26	直腸～S状結腸	あり	m	手術	生存	佐々木ら ¹³⁾
13	58	女	動悸、倦怠感	2週間	14	直腸	あり	m	手術	生存	柳父ら ¹⁴⁾
自験例	83	女	粘液便	16ヶ月間	10	直腸	あり	sm	手術	生存	

(m: 粘膜層, sm: 粘膜下層)

で、山下ら⁹⁾も41.7%が粘膜層までと報告している。今回の我々の検討においても、92.9%に癌を合併していたが、ほとんどの症例で深達度は粘膜層までであった。

EDSの明確な定義や診断基準はないが、佐々木ら¹³⁾によればEDSの特徴は①高齢者、②病歴が長い、③腫瘍が10cm以上、④直腸、S状結腸に腫瘍が存在、⑤多量の下痢と電解質異常、⑥癌の合併、としており、これらを参考にEDSの診断を行うとされる。大野ら¹⁶⁾によると腫瘍から分泌される粘液は血清の約13.2倍におよぶKを含有しているという。また、腫瘍径が大きいために、正常な直腸粘膜の面積が狭くなり再吸収が低下することも、脱水や電解質喪失の原因と考えられている¹⁶⁾¹⁷⁾。大量の粘液を分泌する機序については、腫瘍由来のPGE2が関与している可能性を述べている報告があるが、まだ解明されておらず、今後の究明が望まれる¹⁸⁾。今回検討したEDS14例のうち、意識障害の確認ができたのが本報告も含めて3例であった。一般的に電解質異常の意識障害の原因として低Na血症が要因と考えられているが、3例以外の報告例の中においても低Na血症、低K血症、低Cl血症を来していた症例もあり、それら全例が意識障害を発症していたわけではなかった。また、これら電解質の異常に加え、脱水、高齢、腎機能障害などの様々な要因が意識障害の発症に関与していると思われ、こ

ういったことが症例によって異なる電解質異常のパターンを来たすのではないと思われる⁴⁾。今回の検討では、明らかな意識障害の原因は解明できなかったが、今後更に症例を重ねた検討が必要と思われる。

診断は下部消化管内視鏡検査、CTおよびMRIにて可能である。絨毛腫瘍は、肉眼的に絨毛状の発育形態を示すことから、その診断は比較的容易であるが、腫瘍そのものが柔らかく、可動性に富み、表面が粘液で覆われていることが多いため、直腸診では触知可能な位置であっても約25%は見逃してしまうという報告もある¹⁷⁾¹⁸⁾。したがって、診断のためには上記のような画像検査および内視鏡検査が必須である。本症例では、大腸絨毛腫瘍の診断に至るまでに3回の入院を要し、診断に苦慮した。初回入院時は頭部CT、上腹部CT、上腹部MRI、上部消化管内視鏡検査などを施行したが、意識障害の原因となりうる異常を認めなかった。2回目の入院時には頭部MRIを施行したが特に異常を認めず、両入院時ともに補液の治療で軽快退院した。3回目の入院時に初めて一部血液を混じた粘液便を指摘されたことを契機に、骨盤部CTを行い、本診断に至ることができた。また、意識障害の原因疾患では、脳血管障害(約50%)、外傷(約10~20%)、中毒(3~5%)が多数を占めている¹⁹⁾。脱水、電解質異常による意識障害は頻度が低く、さらに大腸

絨毛腫瘍による EDS が意識障害を来たすことは稀であると考えられる。高齢者の意識障害では、脳血管障害による一次性意識障害の頻度が高いが、様々な全身疾患による二次性意識障害の頻度も高い²⁰⁾。そして、これらの病態が重複して存在していることも少なくない。よって高齢者の意識障害では、一つの原因に囚われることなく、併存疾患の可能性を常に考えることが大切であると考えられる。さらに、認知症がある場合には本人が症状を訴えられないことがあるため、便の性状などの細かな観察や直腸指診などのスクリーニングのための基本的な診察を確実に行うことが、本疾患の診断には重要であると考えられる。

治療は原則として切除である。前述の如く、本疾患は腫瘍径のわりに癌の深達度が浅いという特徴があることから、明らかな進行癌が疑われる症例以外は、局所切除を選択すべきと思われる。特に本疾患の好発部位である直腸では、過大侵襲により肛門機能や性機能の障害を引き起こす問題があり、肛門機能を温存した術式を選択を考慮すべきであろう。本症例でも経肛門的腫瘍切除を行い、現在再発を認めていない。大腸絨毛腫瘍についての化学療法についての報告は、ほとんどされておらず、今回検索しえた限りでも大田らの 1 例のみであった¹⁰⁾。今後、症例を重ねた更なる検討が必要と思われる。

IV 結語

脱水および電解質喪失による意識障害を伴った直腸絨毛腫瘍の一例を経験した。本疾患は癌合併率が高いという特徴もある。下痢に伴い、脱水・電解質異常・意識障害などを認めた場合は大腸絨毛腫瘍も念頭におき、早期発見・治療に努める必要があると考えられた。

V 参考文献

- 1) 八杉晶子, 松岡宏至, 大谷英之, 他: 電解質喪失症候群をともなった直腸絨毛腫瘍の 1 例. 日本消化器病学会雑誌 106 : 377-382, 2009.
- 2) 武藤徹一郎, 安達実樹: 大腸の villous tumor 定義と治療. 胃と腸 21 (12) : 1365-1372, 1986.

- 3) 高久秀哉, 鈴木俊繁, 長倉成憲, 他: Electrolyte depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌 70 (1) : 137-140, 2009.
- 4) 石橋陽子, 西田麗, 加藤総介, 他: Electrolyte depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の 1 例. Gastroenterological Endoscopy 50 (7) : 1615-1619, 2008.
- 5) 山本志津香, 原田佐智夫, 山本芳樹, 他: 電解質異常を来した大腸絨毛腫瘍の 1 例. 洛和会病院医学雑誌 19 : 55-61, 2008.
- 6) 安田里司, 中尾武, 平尾具子, 他: Electrolyte depletion syndrome を呈し経肛門的に切除し得た直腸絨毛腫瘍の 1 例. 日本外科系連合学会誌 33 (1) : 58-63, 2008.
- 7) 石井要, 田島秀浩, 神野正博: Electrolyte depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の 1 例. 日本大腸肛門病学会雑誌 61 (1) : 46-50, 2008.
- 8) 赤澤貴洋, 筑紫さおり, 鈴木康史: 大腸の絨毛腫瘍が原因となり EDS (Electrolyte Depletion Syndrome) を伴う急性腎不全を併発した 1 例. ICU と CCU 31 別冊号 : 162-163, 2007.
- 9) 山下秀樹, 劉中誠, 松本佳博, 他: Electrolyte depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の 1 例. 日本消化器外科学会雑誌 39 (2) : 260-264, 2006.
- 10) 太田貢由, 石井正之, 山口茂樹: 他: Electrolyte depletion syndrome を呈し, 骨盤内再発をきたした直腸巨大絨毛腫瘍の 1 例. 日本大腸肛門病学会雑誌 58 (6) : 326-330, 2005.
- 11) 野中道泰, 吉田晃治, 池尻公二, 他: 肛門よりの腫瘤脱出で発見された直腸巨大 villous tumor の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌 65 (3) : 735-738, 2004.
- 12) 山根成之, 澤田隆, 清水哲, 他: Electrolyte depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の 1 例. 鳥取医学雑誌 29 (2) : 81-85, 2001.
- 13) 佐々木裕茂, 林勝知, 鬼束惇義: 直腸, S 状結腸を占拠し electrolyte depletion

- syndrome を呈し広範囲に m 癌を伴った絨毛腺腫の 1 例. 日本消化器外科学会雑誌 32 (12) : 2684-2688, 1999.
- 14) 柳父宣治, 佐藤友信 : Electrolyte depletion syndrome を伴い, 組織学的に高分化腺癌であった直腸 villous tumor の 1 例. 日本臨床外科学会雑誌 60 (5) : 1350-1354, 1999.
 - 15) 原岡誠司, 岩下明德, 八尾隆史 : 大腸 villous tumor—定義と問題点. 早期大腸癌 5 (1) : 9-22, 2001.
 - 16) 大野康治, 古川正人, 中田俊則, 他 : Depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の 1 例と本邦報告 7 例の検討. 日消外会誌 18 (5) : 1016-1019, 1985.
 - 17) Bryan W, Henry J, William W et al : Recurrent acute renal failure due to a rectal villous adenoma. Postgraduate Medical Journal 64 : 631-633, 1988.
 - 18) Steven K, Lange P, Bukhave K et al : Prostaglandin E2-mediated secretory diarrhea in villous adenoma of rectum : effect of treatment with indomethacin. Gastroenterology 80 : 1562-1566, 1981.
 - 19) 岡田和悟, 小林祥泰 : 意識障害. 内科診断学 (福井次矢, 奈良信雄) 医学書院. 2000. 517-521.
 - 20) 飯島節 : よくみられる主訴に対する対処 軽い意識障害, せん妄. Geriatric Medicine 42 (2) : 188-190, 2004.

A case of rectal villous tumor with episodic unconsciousness

Jun Takamoto¹⁾, Ouki Yasui²⁾, Makoto Sato²⁾,
Yuta Sato¹⁾, Osamu Yasuda¹⁾, Kenichi Matsuda¹⁾,
Atsushi Kamada³⁾

Abstract

An 83-year-old woman was admitted to our hospital for recurrent unconsciousness caused by hyponatremia. Brain MRI was normal. After admission, profuse mucous stool with blood was observed, and on colonoscopy, a villous tumor was seen in the lower rectum. The tumor secreted profuse mucus, which was thought to be the cause of the hyponatremia. A transanal wedge resection of the villous tumor was performed. Histological examination of the specimens revealed tubular adenocarcinoma in a tubulovillous adenoma. The patient's postoperative course was good, and her level of consciousness improved.

(Key words: villous tumor, unconsciousness, electrolyte depletion syndrome)