

一症例一

Colonic lymphangiectasia の1例

東邦大学第1外科

西谷亮一郎 鈴木 義雄 小林 一雄
松橋 理 松岡 淳 尾作 忠彦

(受付昭和48年7月12日)

A CASE REPORT, OF COLONIC LYMPHANGIECTASIA

Ryoichiro NISHITANI, Yoshio SUZUKI, Kazuo KOBAYASHI
Osamu MATUHASHI, Atushi MATUOKA, Tadahiko OSAKU

1st Dept. of Surgery, School. of Medicine Joho University

はじめに

小腸のリンパ管拡張症は多数の報告をみるが、大腸のリンパ管拡張症の報告はきわめて数少ない。最近、著者らは全結腸、直腸に発生したColonic Lymphangiectasia の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：伏○春○，40才，男性。

主訴：水様性下痢および粘血便。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：昭和45年6月より polycythemia の診断で当内科外来へ通院。

現病歴：約6~7年より下痢気味であつたが2~3年前より、特に酒飲後、水様便を呈することが多く、昭和47年9月14日、粘血便を伴つて当院内科を受診し、大腸透視の結果、Colon Polyposis の診断で当科へ転科する。

入院時現症：体格中等度、栄養良好。脈拍74/分整。血圧150/92mmHg。貧血(-)。黄疸(-)。呼吸数20/分整。肺機能正常。胸部に理学的所見なし。表在リンパ節触知せず。腹部は平坦で軟。圧痛(-)。腫瘤ならびに肝、脾、腎、触知せず。臍反射正常、浮腫なし。

検査成績：表1のごとく、血色素量ならびに赤血球の増多およびA/G比の上昇以外に著変なく、心電図、胸部レントゲン等にも異常所見は認めな

表 1

ワ氏反応	(-)	血清蛋白	7.2%
ヘモグロビン	17.2 g/dl	A/G	4.6 g/dl
ヘマトクリット	50%	黄疸指数	7 単位
赤血球	549 × 10 ⁶ /mm ³	S-GOT	43 単位
白血球	5,500/mm ³	S-GPT	39 単位
血沈	正常	LDH	154 単位
糞便			(Hill 変法)
潜血反応	(-)	AL-Ph	9.7 K.A. 単位
尿		アミラーゼ	200 D $\frac{38^{\circ}}{30\gamma}$
潜血	(-)	ICG	6.4%
蛋白	(-)	PSP	正常
糖	(-)	血清	
比重	1013	Na	137.0 mEq/L
ウロビリノーゲン	(±)	K	4.4 mEq/L
		Cl	104 mEq/L
		血糖	88 mg/dl
		尿素窒素	8.2 mg/dl

かつた。

注腸透視所見：充盈像で全結腸、直腸に Polyp 様陰影欠損が無数にみられ(写真1)、二重造影では(写真2)広い基底をもつた Sessile 様 Polyp が散在したので Colon Polyposis の診断を下した。

大腸ファイバースコープ所見：管腔の拡張、伸展は良好で、粘膜の浮腫および炎症は伴わないが、Rectum より Ceacum まで多数の無茎性ポリープが散在し(写真2)、大きさは数mmのものか

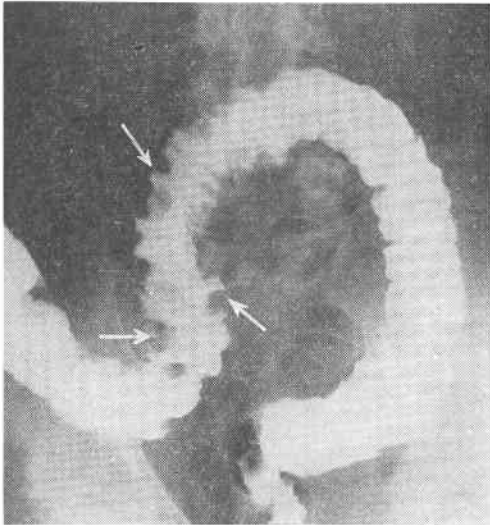


写真1. 腹臥位充盈像 S 状結腸に無数の Polyp 様陰影欠損がみられる。

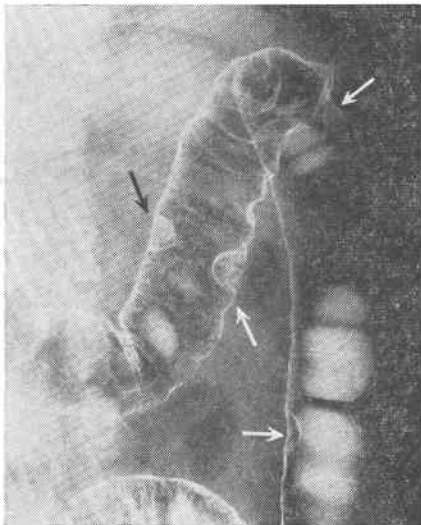


写真2. 二重造影下行結腸, 横行結腸に Sessile 様 Polyp が散在している。

ら数cmのものまで種々のものが混在した。注腸透視と同様に Colon Polyposis の診断が下された。

腸間膜動脈撮影所見：選択的上, 下腸間膜動脈撮影にて (写真4, 5), malignant Polyps にみられるような, vasa recta の不規則な屈曲, 蛇行, 断裂, 新生血管等の所見はこれら Polyp にはみられなかつた。

手術所見：昭和47年11月20日手術施行。S 状結腸の一部が腸間膜に癒着しており, 注腸透視の所

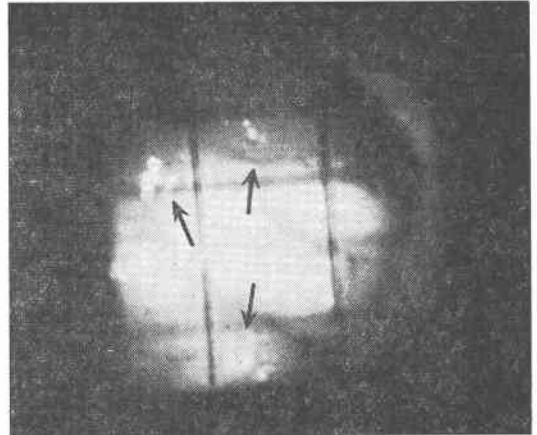


写真3. コロノファイバースコープ Sessile 様 Polyp がみられる。

見のごとく, 全結腸に触診上 Polyp を認めたので, Subtotal Colectomy を施行し回腸 S 状結腸端々吻合を施行した。また横行結腸の一部の漿膜面に Cyst を思わせる透明な Polyp を 2, 3 認めたが, この時点では Colonic Lymphangiectasia を考慮しえなかつた。

切除標本：摘出標本を Tenia libera 上で開いた (写真6)。肉眼的に粘膜下に多数の散在する cystic な tumor を認めた。半透明で単胞性のものと, 多胞性のもがあり, 暗赤色でやや硬いものがあり, 総計48個が数えられた。

大きさの種類のうちわけは以下のとおりである (表2)。また内容液の生化学的性状は (表3) のごとくで, K 9.0 mEq/L, 無機燐7.25mg/dl と高値を示している。

病理組織学的所見：数枚の標本はそれぞれ cyst

表 2

a) 黄色でやや粘稠な液を入れたもの	
2 cm 以上のもの	8 ㇿ
1 cm 以上のもの	4 ㇿ
0 ~ 1 cm 迄のもの	24 ㇿ
計	36
b) 暗赤色で血液様内容を入れたもの	
2 cm 以上のもの	1 ㇿ
1 cm 以上のもの	1 ㇿ
0.5 ~ 1 cm 迄のもの	3 ㇿ
0 ~ 0.5 cm 迄のもの	7 ㇿ
計	12

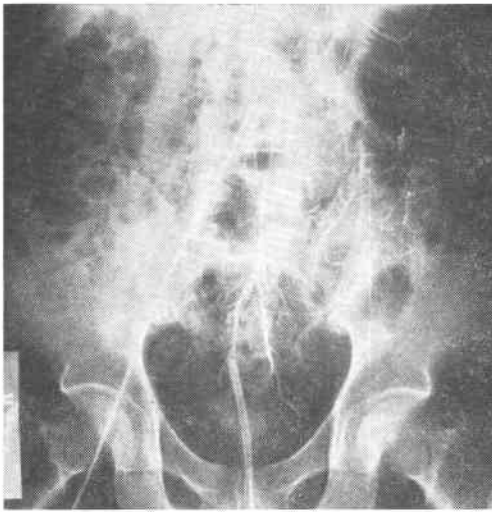


写真4. 選択的下腸間膜動脈撮影

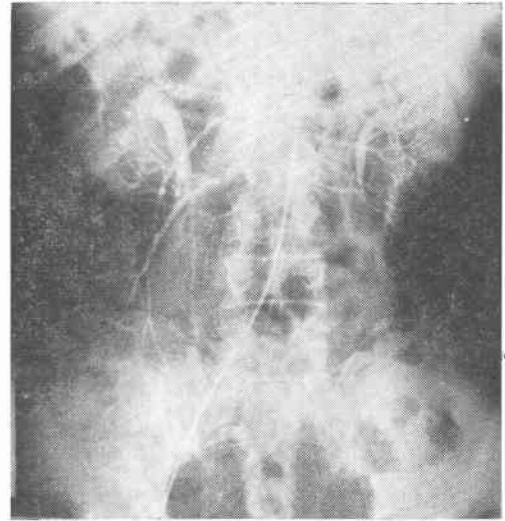


写真5. 選択的上腸間膜動脈撮影

いずれも Vasa recta の異常所見はない。

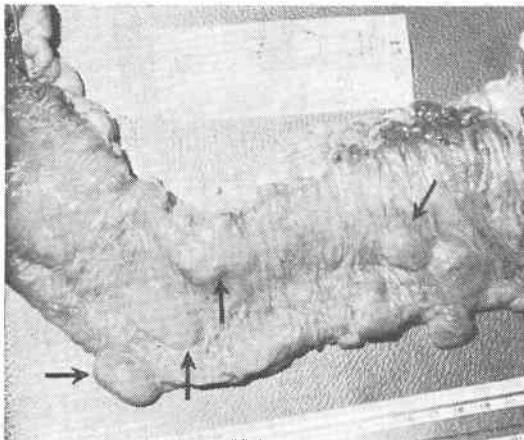


写真6. 摘出標本

肉眼的に Crystic tumor が散在する。

の大小不同はあるが、組織学的にも肉眼的にも同様の所見を呈している。剖面をみると粘膜下に類円形の cystic な tumor がある。被覆粘膜は炎症性細胞浸潤著明で粘膜筋板は正常である。粘膜下組織中に一層の内皮細胞様細胞におくわれた囊胞が数個みられ(写真7)、周囲間質は毛細血管の増殖が著明な結合織より形成されている。囊内容物はエオジン淡紅色、均一無構造で内壁には小数のリンパ球が附着している。以上の所見より、病理組織学的に Lymphangiectasia と診断された。

術後経過：術後の回復は順調で、術直後は1日

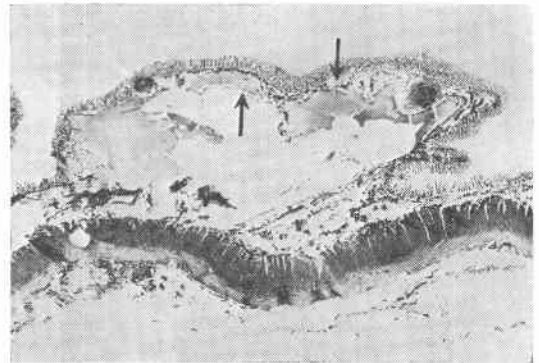


写真7. 病理標本

粘膜下組織中に一層の内皮細胞様の細胞におくられた囊胞が数個みられる。

6～7回の水様便であつたが、退院時には軟便～普通便となつた。

術後3週間後に残存直腸に Romanoscopy 検査を行ない、肛門縁よりの15cmおよび18cmの部位に小指頭大および豌豆大の cyst を2個認めている。退院後、残在 cystの経過を観察しているが、現在でも cystの大きさの変化はなく、便通も正常である。

考 按

1959年 Gordon¹⁾ は Hypercatabolic hypoprotei-nemia と診断された患者たちを検索するため、¹³¹I-labelled P.V.P. を静注した後、排出された便の

I¹⁸¹ 濃度を測定したところ、消化管の粘膜からこの物質が大量に失われていることを知った。彼は低蛋白血症の原因はこのようにアルブミンが失われるためであろうと結論した。消化管の Biopsy は行なわなかつたが、彼はこの状態を *exudative enteropathy* とよんだ。1961年 Waldmann²⁾ らは *idiopathic hypoproteinemia* と診断された患者たちの消化管の役割りについて、アルブミン合成とその喪失を研究することにより解明しようと試みた。限局性回腹炎、潰瘍性大腸炎、胃巨大皺壁症、スプルーなどのように明らかに消化管よりの蛋白が失われるものは除外した。男性5例、女性7例よりなる12例はすべて27才以下に初発症状を呈し、全身に浮腫の発見をみた。1例をのぞく他の11例は軽度～中等度の下痢を伴っていた。病理組織は小腸から全例えられ、粘膜および粘膜下のリンパ管が拡張している特徴を有していた。このようにこれらの患者たちの低蛋白血症の原因はアルブミン合成障害のためでなく、拡張したリンパ管の破綻をきたし、そのため消化管中にリンパ液が分泌されることに起因するものであり、これらの疾患に対し彼は *Intestinal lymphangiectasia* という名称を与えた。

Colonic Lymphangiectasia の症例報告は、1967年 Cohen³⁾ が22才の女性で4年間1日8回にわたる水様性下痢を主訴として来院し、著明な蛋白喪失と脂肪便下痢症を伴う *Malabsorption* の1例を報告したのにはじまる。

1968年 Schaefer⁴⁾ らは55才の女性で、水様性下痢を伴い、著明な低K血症のため全身倦怠感を訴えた1例を報告した。

1969年 Ivey⁵⁾ らは Cohen が報告した同一症例をさらに詳細に検討し報告した。それによると、この症例の臨床的特徴ならびに蛋白喪失は、Waldmann らが述べた小腸リンパ管拡張症と同様であり、*Colonic lymphangiectasia* における蛋白喪失は拡張したリンパ管が直接 *Mucosa* に破れたために生ずるのであろうと推論している。

1972年 Griffen⁶⁾ らは電解質異常特に低K血症を伴う *Colonic lymphangiectasia* の2例を報告したが、このうちの1例は以前 Schaefer らが報告した症例である。以上のように3例の *Colonic*

lymphangiectasia の報告がみられ、1例は小腸リンパ管拡張症と同様低蛋白血症を伴っており、他の2例は電解質、とくに低K血症を伴う報告例であつた。さて以上のような報告例とわれわれの症例とを比較検討してみると、主訴は全例下痢であり、われわれの症例も水様性下痢および粘血便を主訴として外来を訪れた。来院時の現症では蒼白、るいそう、筋萎縮、浮腫等をあげているが、Cohen³⁾、Ivey⁵⁾ の症例の浮腫は低蛋白血症に基づいたものであるのに反し、Schaefer⁴⁾、Griffen⁶⁾ の症例の浮腫はアルコール中毒による肝障害によるもので、この患者の直腸液に十分な蛋白を含んでいなかったと述べている。われわれの症例では下痢便の生化学的検索は行なっていないが、血清蛋白および血清Kの低下は認めていない。

注腸透視による術前診断は Cohen³⁾、Ivey⁵⁾ らは潰瘍性大腸炎、Schaefer⁴⁾ はS状結腸の異常な粘膜肥厚を指摘しており、また Griffen⁶⁾ は *Multiple Sessile Polyps* と診断している。著者らの術前診断は *Colon Polyposis* であつた。いずれも、術前 *Colonic Lymphangiectasia* と診断を下したものはなかつた。これは、*Colonic Lymphangiectasia* が非常にユニークな疾患であつたため、術前診断のむづかしさを物語つていた。

Marshak⁷⁾ によると小腸の *Lymphangiectasia* の透視所見は広範なしかも対称的な粘膜の肥厚と分泌過多がみられ、*nodular defect* や *Segmentation*、*dilatation* は通常みられないと述べている。*Colon Polyposis* の注腸所見の特徴は *Sessile* ならびに *Pedunculated* の種々の *Polyp* 像を呈するのに反し、われわれの *Colonic Lymphangiectasia* の注腸所見を *retrospective* に検討してみると、すべての *Polyp* が *Sessile* であり、*Water density* の像を呈しており、これが *Colonic Lymphangiectasia* の特徴ではなからうかと反省している。

全症例に外科的切除が行なわれており、Cohen³⁾、Ivey⁵⁾ の同一症例は左半結腸切除、Schaefer⁴⁾ は45cmのS状結腸切除、Griffen⁶⁾ は35cmのS状結腸切除を行なっており、われわれは結腸亜全摘を施行した。

Cohen³⁾、Ivey⁵⁾ の症例は術中、数カ所の小腸 *Biopsy* が正常であつたにもかかわらず、術後6カ

月後に、低蛋白血症ならびに脂肪便下痢症の再燃をみたことより、多分小腸 Lymphangiectasia を伴っているのではなからうかと推論している。Schaefer⁴⁾ Griffen⁶⁾ の症例は術後低 K 血症および下痢は改善された。われわれの症例も主訴である下痢の改善をみた。

以上のごとく外国の報告例は低蛋白血症ならびに低 K 血症を伴った Colonic Lymphangiectasia であつたが、われわれの症例は検査上いずれの障害も認められないが、切除標本からえられた Cyst の内容の生化学的検査データ（表3）より K =

表3 内容液の性状

比重	1034	*K	9.0 mEq/L
*蛋白量	4.2 g/dl	Cl	72 mEq/L
リバルタ反応	陽性	Ca	3.48 mEq/L
細胞 赤血球	(卅)	*無機磷	7.25mg/dl
線維素折出	(卅)	Mg	2.06mg/dl
細菌検査	(一)	総脂質	60mg/dl
Na	91.5 mEq/L		

9.0mEq/L, 無機磷=7.25mg/dlと血清よりいぢるしい高値を示し、また蛋白量は 4.2 g/dl を含有していることにより、もし Cyst が一旦破綻をきたしたならば、外国の報告例にみられるような低 K, 低蛋白を惹起するのではなからうかと考えられる。

おわりに

40才の男性で、水様性下痢便を主訴として来院し、術前注腸透視で Colon Polyposis の診断のもとに、結腸亜全摘を行ない、病理組織学的に Colonic Lymphangiectasia と診断されたきわめてめずらしい1例を経験したのでここに報告した。

文 献

- 1) Gordon, R.S., Jr.: Exudative enteropathy. Abnormal permeability of the gastrointestinal tract demonstrable with labelled polyvinylpyrrolidone. *Lancet* 1: 325—326, 1959.
- 2) Waldmann, T.A., et al.: The role of the gastrointestinal system in "idiopathic hypoproteinemia" *Gastroenterology* 41: 197—207, 1961.
- 3) Cohen, W.N.: Intestinal lymphangiectasia. *Radiology* 89: 1080—1082, 1967.
- 4) Schaefer, J.W., et al.: Colonic lymphangiectasia associated with a potassium depletion syndrome. *Gastroenterology* 55: 515—521, 1968.
- 5) Ivey, K., L., et al.: Lymphangiectasia of the colon with protein loss malabsorption. *Gastroenterology* 67: 709—714, 1969.
- 6) Griffen, W.O., Jr.: Colonic lymphangiectasia: Report of two cases. *Dis. Colon & Rectum*, 15: 49—54, 1972.
- 7) Marshak, R.H., et al.: Malabsorption Syndrome. *Seminars in Roentgenol.* 1: 138—177, 1966.