

十二指腸・空腸上部・空腸間膜および回腸に 多発したリンパ管腫の1例

大阪大学第1外科 (*現 国立呉病院外科)

井上 善文* 大久保修和 福澤 正洋
井村 賢治 北爪 博文 宮田 正彦
岡田 正 中尾 量保 川島 康生

岸和田徳洲会病院内科

三 杉 進 藤 森 次 勝
湯 浅 肇 広 岡 大 司

A CASE OF LYMPHANGIOMA FOUND MULTIPLY IN THE DUODENUM, THE UPPER JEJUNUM, THE JEJUNAL MESENTERIUM AND THE ILEUM

Yoshifumi INOUE, Nobokazu OHKUBO, Masahiro FUKUZAWA, Kenji IMURA,
Hirofumi KITAZUME, Masahiko MIYATA, Akira OKADA,
Kazuyasu NAKAO and Yasunaru KAWASHIMA

First Department of Surgery, Faculty of Medicine, Osaka University

Susumu MISUGI, Tsugikatsu FUJIMORI, Hajime YUASA and Taiji HIROOKA

Department of Internal Medicine, Kishiwada Tokushukai Hospital

索引用語：十二指腸リンパ管腫，臍頭十二指腸切除術

I 緒 言

十二指腸リンパ管腫はきわめてまれなもので，間山¹⁾らは本邦においては十二指腸良性腫瘍の約1.9%と報告している。我々は十二指腸・空腸上部・空腸間膜および回腸に発生したリンパ管腫に対し，腫瘍摘出術および臍頭十二指腸切除術を施行した1例を経験したので，現在までの十二指腸リンパ管腫の報告11例についての文献的考察を加え報告する。

II 症 例

患者：56歳，女性。

主訴：左側腹部痛。

家族歴：特記すべき事項なし。

既応歴：34歳時子宮外妊娠にて手術。36歳時全身性浮腫にて半年入院。原因不明。

現病歴：昭和54年12月14日。左側腹部痛，悪寒が出現。翌日には腹部膨満，38℃の発熱とともに左側腹部痛が増強したため近医に入院した。入院時，左側腹部に抵抗と圧痛を認め，また腸蠕動運動は低下していた。

腹部立位単純X線にて軽度の小腸拡張像を認め，軽いイレウス状態と診断し，絶食・輸液・抗生物質による治療を行った。2日間で解熱し腹痛，腹部膨満とも消失した。以後，左側腹部の圧痛以外には自覚症状はなかった。その後上部消化管造影，内視鏡などにより十二指腸から空腸に多発する粘膜下腫瘍と診断され，手術目的にて昭和55年6月3日，当科に入院した。

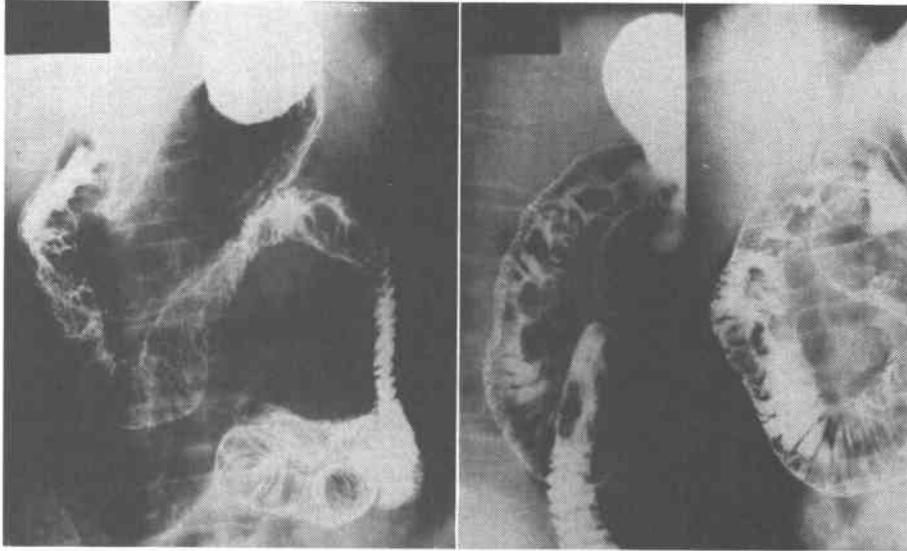
入院時所見：身長146cm，体重61Kg。栄養良。血圧134/74mmHg，脈拍数75/分，整。眼球および眼瞼結膜に異常所見を認めず。表在リンパ節を触知せず。腹部は平坦，軟であるが左側腹部に弾性硬の腫瘤を触知する。辺縁不鮮明，可動性不良，凹凸不整。軽度の圧痛を認める。肝・脾・腎は触知せず。下腿浮腫なし。

入院時検査所見：RBC 408×10⁴，Hb 10.1g/dl Ht. 31.1% WBC 3,300 (ST. 1% Seg. 64% Ly. 32% Eo. 2% Mo. 1%) 骨髓穿刺にて細胞数などでは正常範囲内にあった。その他血液・尿などの検査にて異常所見を認めなかった。

図1 上部消化管造影(左)

低緊張性十二指腸造影(右2枚)

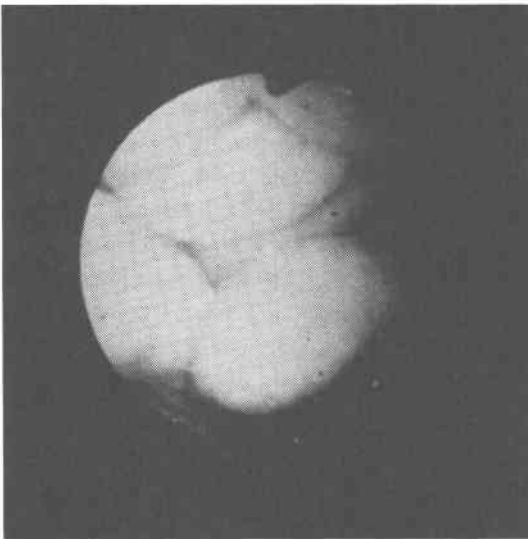
十二指腸球部から空腸上部にかけて多発性の陰影欠損を認める。Treitz 靱帯付近の空腸は左上方へ圧排されている。



上部消化管造影，低緊張性十二指腸造影：十二指腸球部から空腸上部に健常部をはさんで隆起性病変を認めた。円形・楕円形の直径1 cm 前後の隆起の集合体

図2 内視鏡検査

十二指腸球部，隆起性病変で，円形・楕円形の隆起が多発しており，表面平滑で色調は健常粘膜よりやや白色調を帯びている。隆起の立ち上がりは健常粘膜より移行しており，粘膜下の病変と考えた。



で，管腔の伸展性も良好であった。また，Treitz 靱帯より肛側の空腸の左上方への圧排を認めた(図1)。

内視鏡検査：十二指腸球部から下行脚にかけて円形・楕円形の隆起が敷石状に密集して認められた。表面は平滑で健常粘膜よりやや白色調を帯びていた。隆起の立ち上がりは健常部より移行しており，粘膜下の病変と考えた(図2)。隆起部の生検を行ったところ，lymphangiectasia of mucosa であったが，粘膜下の病変と考えたので，いわゆる big particle biopsy といわれるポリベクトミー用のスネアによる生検を行った。その結果十二指腸の粘膜固有層から粘膜下にかけて大小不同の vascular channel があり，リンパ液と思われる液体と xanthoma cell を認め，リンパ管腫と診断した。

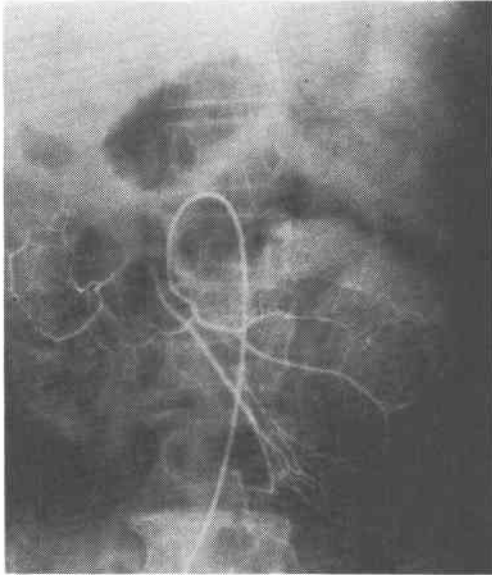
腹部血管造影：上腸間膜動脈造影で十二指腸下行脚から空腸上部に分布する空腸動脈の stretching および末梢動脈の壁不整が認められた。これは腫瘤による圧排像と考えられた。tumor stain は認められなかった(図3)。

腹部 CT scan：胸骨剣状突起下130mm の高さで左腎の前方に CT 値-37 と脂質に富んだ組織から成る腫瘤陰影を認めた。腫瘤と空腸壁との境界は不鮮明で，前方は腸管を圧排するように発育していた(図4)。

以上の所見より十二指腸から空腸上部に多発するリ

図3 上腸間膜動脈造影

Treitzから空腸上部に分布する血管の stretching および末梢の壁不整を認める。



リンパ管腫および後腹膜腫瘍と診断した。

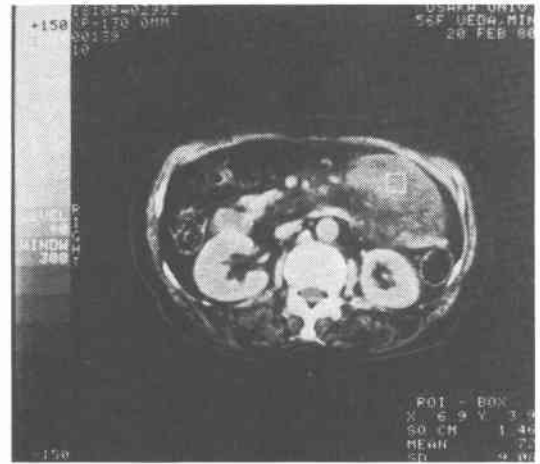
手術所見：上腹部正中切開にて開腹したところ、後腹膜腫瘍と思われた腫瘍は空腸上部の腸間膜に存在し、凍結切片にてリンパ管腫と診断しえた。腫瘍は十二指腸壁より剝離できず、Treitz 靱帯周囲の十二指腸・空腸を含めて腫瘍を摘出した。十二指腸断端よりの触診にて、球部にも多数の腫瘍が触知され、また空腸間膜根部、脾頭部周囲脂肪組織にもリンパ管の拡張が認められ、腫瘍の占める範囲が広範で、かつ十二指腸壁との連続性を認めたため脾頭十二指腸切除術を施行した。全腸管を検索したところ、Treitz 靱帯より肛側120cmの部位、腸間膜付着部反対側に直径約1cmの腫瘍が認められたので、この部は楔状切除により摘出した。

摘出標本肉眼所見：十二指腸の粘膜下腫瘍は乳白色でやや硬く実質性。球部から空腸上部にかけて直径5mmから10mmのものが健常部をはさんで多数密集してポリープ状に突出していた。腸間膜リンパ管腫は8×8×10cmの乳白色の硬い実質性腫瘍。剖面は乳白色で径約1mmの出血点が散在していた。十二指腸上行脚の腫瘍と腸間膜リンパ管腫は連続していた(図5, 6)

病理組織所見：十二指腸粘膜上皮は異型性を示していないが、固有層には管腔状の拡張を示す構造が多数

図4 腹部CT scan

剣状突起下120mmと130mm、腫瘍はCT値-37と脂質に富んだ組織で、脾臓、腸管との境界は明確でない。



みられ、内容として脂質を思わせる空泡を混じったリンパ液が認められた。腫瘍は海綿状リンパ管腫で、内皮細胞と間歇的に存在する平滑筋を有する壁と大小さまざまな拡張したリンパ管を認めた。内腔はエオジン淡染性のコロイド様物質で満たされていた。腸間膜リンパ管腫も同様に海綿状リンパ管腫で、Treitz 靱帯より肛側120cmの腫瘍も同じ組織像を呈していた。また、脾頭部周囲脂肪組織、空腸間膜根部に lymphangiectasia の所見が得られた(図7)。

術後経過：脾液瘻が認められたが、経中心静脈栄養を施行し、術後約2カ月で経口摂取が可能となり、退院した。

図5 摘出標本

幽門部, 十二指腸, 空腸上部を切開した。腫瘤はポリープ状に内腔に突出している。腸管膜腫瘤は空腸間膜に存在し, 十二指腸水平脚と連続している。

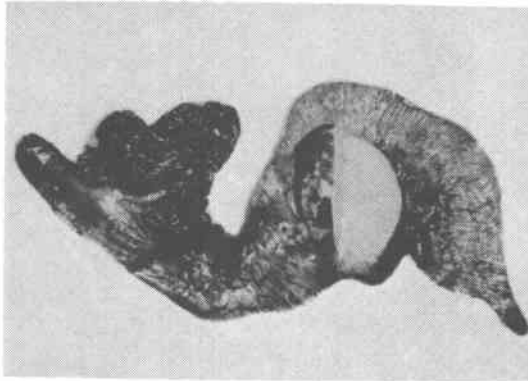


図7 摘出標本(×400) H.E. 染色

内皮細胞と平滑筋組織から成る壁と, その内腔にエオジン染色性のコロイド様物質を認める。円形細胞の浸潤を認める。

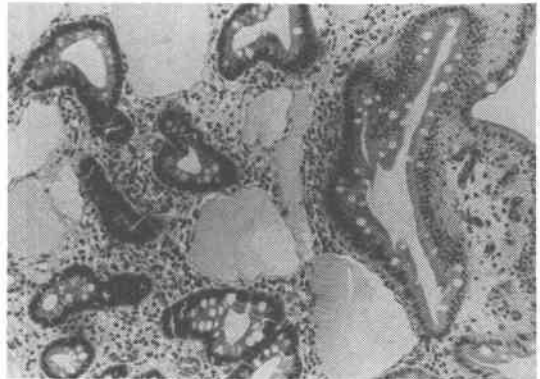
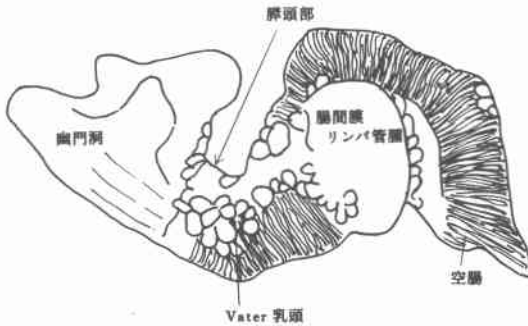


図6 摘出標本の模式図



III 考 察

十二指腸リンパ管腫は欧米で6例, 本邦で5例の報告がある(表1)。年齢は24歳から72歳におよび男女差はない。橋本²⁾Charles³⁾の症例を除いた9例は単発性である。橋本の症例は膵頭部と十二指腸下行脚をおおう腫瘤で十二指腸粘膜にポリープ状隆起をみたものである。Charlesの症例は十二指腸乳頭周囲にポリープ状隆起が多発したものである。発生部位は下行脚に7例, 水平脚に2例, 上行脚に2例であるが球部に発生したという報告はない。大きさは径1~2 cmのもの

表1 十二指腸リンパ管腫の報告例

報告年	報告者	年齢・性	主 訴	*1 部 位	大 き さ	治 療	診 断 手 技
1 1945	Hoffman	72 ♂	呼吸困難 *2	I	2.1×1 cm		剖 検
2 1959	Davis	65 ♀	右上腹部痛	II	≠ 3 cm	記載なし	開腹時生検
3 1968	Charles	56 ♂	上腹部痛	I	*3 2 cm	*4 生 検	開腹時生検
4 1965	橋 本	24 ♂	上腹部痛	*5 I	ポリープ大	膵頭十二指腸切除	開腹時生検
5 1966	Elliott	34 ♂	上腹部不快感	I	6×4×1 cm	腫瘍及び膨大部切除	開腹時生検
6 1969	佐久間	33 ♂	上腹部鈍痛	I	ポリープ大	腫瘍切除術	開腹時生検
7 1972	島 筒	61 ♀	心窩部不快感	II	ポリープ大	腫瘍切除術	開腹時生検
8 1973	福 永	66 ♀	心窩部不快感	I	1.8×1.5×1.2 cm	十二指腸楔状切除	開腹時生検
9 1974	Grund	62 ♀	上腹部痛	II~III 移行部	サクランボ大	腫瘍切除術	開腹時生検
10 1977	松 川	52 ♂	心窩部不快感	I	母指頭大	表面囊胞壁切除	開腹時生検
11 1977	Sauerbruch	66 ♀	心窩部痛	II	2.5×2×1.5 cm	内視鏡的切除	内視鏡的生検
12 1982	自 験 例	56 ♀	左側腹部痛	I~II	5~10 mm	膵頭十二指腸切除	内視鏡的生検

*1 (I : 十二指腸球部, II : 下行脚, III : 水平脚, IV : 上行脚) を示す。
 *2 慢性肺疾患により死亡。剖検によりはじめて十二指腸リンパ管腫が発見された。
 *3 5 cm の範囲に多発。最大のものが腔内に2 cm 突出。
 *4 十二指腸腫瘍に対して幽門形成術施行。腫瘍摘出は施行せず, 術前の症状が持続した。
 *5 膵頭部と下行脚周囲をおおう超手拳大の腫瘍で, 十二指腸下行脚粘膜面にポリープ状に突出。

がほとんどである。症状は上腹部不快感ないし鈍痛で、十二指腸リンパ管腫に特徴的なものはない。診断は、Sauerbruch⁴⁾は内視鏡的生検にてリンパ管腫と診断しているが、それ以外の症例は上部消化管造影において陰影欠損等の所見から十二指腸ポリープ、あるいは粘膜下腫瘍と診断し、開腹時の摘出標本の組織診にて確診されている。我々の症例も内視鏡的生検で術前に診断できたが、通常の粘膜 biopsy では lymphangiectasia の所見しか得られず、big particle biopsy によりはじめて確診できた。

手術術式の選択については、単発性の場合、佐久間⁵⁾、島筒⁶⁾、Grund⁷⁾は腫瘍摘出、福永⁸⁾は腫瘍を含めた十二指腸楔状切除、松川⁹⁾は表面嚢胞壁切除を行っている。Elliott¹⁰⁾は腫瘍が乳頭をとりまいて発生していたため腫瘍および膨大部切除を行っている。橋本²⁾は膵頭部と十二指腸下行脚全周をおおう腫瘍に対し膵頭十二指腸切除を施行している。Charles³⁾は生検のみである。

我々の症例は十二指腸から空腸上部にリンパ管腫が多発しており、膵頭部周囲脂肪組織空腸間膜根部にまでリンパ管の拡張がみられたため、空腸上部を含めた腸間膜リンパ管腫摘出術および膵頭十二指腸切除術を施行した。回腸リンパ管腫は単発性であったため楔状切除により摘出した。

十二指腸リンパ管腫は良性で、再発および悪性化についての報告はない。しかし古本¹¹⁾は体表部のリンパ管腫28例に摘出術を施行し、そのうち2例に術創部での再発をみた報告している。また、Wood¹²⁾やRaszkowski¹³⁾らは広範な腸間膜リンパ管腫や嚢腫の場合には限局性のものに比べて完全摘出が困難なことが多く、この場合には再発の可能性があるとして述べている。

現在のリンパ管腫に対する治療方針は、悪性化がないと考えられているため、過大な侵襲となるような治療は避け、単なる摘出術のみでよいとされている。しかし残存腫瘍より再発の可能性があることから、完全摘出を目的とした治療を選択すべきであるとする。

IV 結 語

56歳女性の十二指腸・空腸上部・空腸間膜・回腸に発生したリンパ管腫に対して膵頭十二指腸切除を施行

した一例を報告し、十二指腸リンパ管腫について文献的考察を加えた。

なお本論文の要旨は第25回日本消化器内視学会近畿地方会で報告した。

文 献

- 1) 間山素行, 西沢 護, 小林茂雄ほか: 十二指腸に腺腫と副脾の合併した1例. 胃と腸 10: 671—675, 1975
- 2) 橋本義雄, 阿部稔雄: 十二指腸膵頭部リンパ管腫. 外科治療 12: 203—210, 1965
- 3) Charles, R.N., Kelly, M.L., Campeti, F., et al: Primary Duodenal Tumors (A Study of 31 cases.) Arch Intern Med 111: 23—33, 1963
- 4) Sauerbruch, T., Keiditsh, E., Wotzka, R., et al: Lymphangioma of the Duodenum (Diagnosis by Endoscopic Resection) Endoscopy 9: 179—182, 1977
- 5) 佐久間崇, 日下史章, 豊田武人ほか: 十二指腸リンパ管腫の1例. 日消病会誌 66: 1388, 1969
- 6) 島筒志郎, 増田哲彦, 中村俊吾ほか: 十二指腸リンパ管腫の1例. 広島医 25: 781, 1972
- 7) Grund, W., Herzer, R., Wehner H., Lymphangiom des Duodenum. Fortschr Rostgenstr 121: 22—254, 1974
- 8) 福永 晶, 市岡五道, 北出文男ほか: 十二指腸リンパ管腫の一治験例. 外科診療 5: 609—611, 1973
- 9) 松川昌勝, 富田志郎, 田畑育男ほか: 十二指腸乳頭近傍にみられたリンパ管腫の一例. 胃と腸 12: 377—380, 1977
- 10) Elliott, R.L., Williams, R.D., Bayles, D., et al: Lymphangioma of the Duodenum: Case report with light and electron microscopic observation. Ann Surg 163: 86—92, 1966
- 11) 古本福市, 岸大三郎, 島筒志郎ほか: リンパ管腫—34症例の検討. 広島医 28: 31—36, 1975
- 12) Wood, K.: Lymphatic cysts of the mesentery. A review of the literature and a report of two cases. Brit J Surg 43: 304—308, 1955
- 13) Raszkowski, H.J., Rehbock, D.J., Cooper F.G., et al: Mesenteric and retroperitoneal lymphangioma. Am J Surg 97: 363—367, 1959
- 14) Hoffman B.P., Grayzel D.M.: Benign Tumors of the Duodenum. Am J Surg 70: 394—400, 1945
- 15) David, J.G., Peck H, Gray BL: Lymphangioma of the Duodenum. Am J Roentgenol 81: 613—615, 1959