

## 卵巣皮様嚢腫を疑われた小腸および小腸間膜リンパ管腫の1例

日本医科大学第1外科, 産婦人科\*, 第2病理\*\*

木山 輝郎 恩田 昌彦 水谷 崇 小林 匡  
沖浜 裕司 松倉 則夫 徳永 昭 田中 宣威  
森山 雄吉 荒木 勤\* 浅野 伍朗\*\*

患者は26歳, 女性。下腹部痛, 不正性器出血が出現したため近医を受診し, 左側卵巣腫瘍(皮様嚢腫)と診断された。当院産婦人科に入院し, 内診, 超音波検査にて子宮の上方に境界不鮮明, 超手拳大の腫瘍がみられた。腹部 computed tomography, 超音波検査にて境界不鮮明, 内部不均一, 最大径8×4cmの腫瘍を下腹部に認めた。開腹術施行し, 回盲部より口側に10cmから50cmの小腸および小腸間膜に嚢胞性腫瘍が認められ, その内容は乳び様であった。小腸切除, 卵巣楔状切除術を施行した。病理組織学的診断は海綿状リンパ管腫であった。

リンパ管腫が小腸に発生することはまれであり, その解剖学的特徴から術前診断は困難とされている。卵巣デルモイド腫瘍が疑われた小腸および小腸間膜リンパ管腫の1例を報告した。

**Key words:** lymphangioma, ileum, iliac mesentery

### はじめに

消化管リンパ管腫はまれであり, なかでも小腸および小腸間膜リンパ管腫の術前診断は困難とされている。今回, 腹部超音波検査, 腹部 computed tomography (以下CT) を行い, 卵巣皮様嚢腫を疑われた小腸

および小腸間膜リンパ管腫の1例を経験したので報告する。

### 症 例

患者: 26歳, 女性。

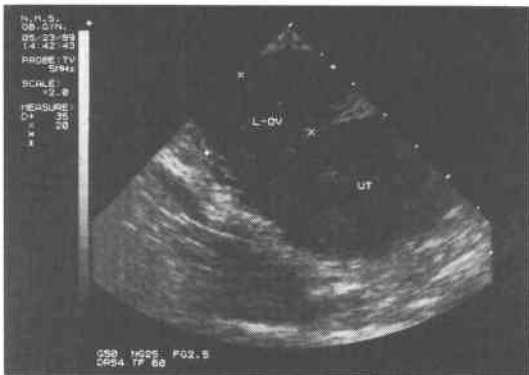
主訴: 下腹部痛, 不正性器出血。

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成元年2月頃より主訴が出現。近医にて超音波検査を行い左側卵巣腫瘍(皮様嚢腫)を疑われ, 当院産婦人科に入院した。初診時, 内診, 超音波検査にて子宮の上方に境界不鮮明, 超手拳大の腫瘍を認めた。超音波検査, 腹部CTにて境界不鮮明, 内部不均

**Fig. 1** Abdominal ultrasonogram showing a low-echogenic mass in contact with the uterus in the lower abdominal cavity. L-OV; left ovary, UT; uterus.



**Fig. 2** Abdominal CT scan demonstrating a varied-density mass in the pelvis (arrow).



一、最大径8×4cmの嚢胞性腫瘤を下腹部(骨盤腔内)に認めた(Fig. 1, 2)。子宮腔部細胞診はClass IIであった。卵巢皮様囊腫の疑いにて、同年6月4日開腹術施行。

手術時所見：卵巢は腫大などの異常所見はなく、主病変は回盲部より口側に10cmから50cmの小腸および小腸間膜であった。小腸管壁、小腸間膜に嚢胞性腫瘤がびまん性に認められた。小腸切除、卵巢楔状切除術を行った。

標本肉眼所見：腫瘤は多房性の嚢胞であり、一部に出血を認めた。嚢胞の内容物は乳び様であった(Fig. 3)。

病理組織学的所見：粘膜内から漿膜、腸間膜にいたるまで大小の管腔構造を認め、その周囲には所々に筋組織を認めた。管腔内容は均一なコロイド様であったが、少数のリンパ球も認めた。嚢胞は扁平な内皮細胞

におおわれ、Factor VIII陰性であった(Fig. 4)。

以上より、海綿状リンパ管腫と診断した。術後経過は順調で、軽快退院した。

考 察

リンパ管腫は小児の頭頸部に多くみられ、消化管に発生することはまれである。Raiford<sup>1)</sup>は11,500の剖検例と4,500の手術例を検討し、87例の小腸腫瘍を報告し、そのうちリンパ管腫はわずか1例であった。本邦においても、八尾ら<sup>2)</sup>は273例の空・回腸の良性腫瘍のうち、3例がリンパ管腫であったと報告している。このように、小腸腫瘍の発生頻度は少なく、その中でもリンパ管腫はきわめてまれである。本邦における小腸リンパ管腫の報告は本症例を含めて11例に過ぎず<sup>3)4)</sup>、小腸間膜リンパ管腫を含めても24例である<sup>5)~8)</sup>。しかし、十二指腸、空腸、回腸の間での発生頻度の差は明らかではない。

小腸良性腫瘍の臨床症状は腹痛、消化管出血のほかは非特異的なものであり、積極的に小腸の検索はされない傾向にある<sup>9)</sup>。近年、X線、内視鏡の進歩により、十二指腸、大腸のリンパ管腫の術前診断は可能になってきたが<sup>3)</sup>、空・回腸はその解剖学的特徴から術前診断は、はなはだ困難である。腸管内へ突出した病変ならば小腸透視により診断が得られるが<sup>4)6)</sup>、今回のように腸間膜囊腫を主とする場合には超音波検査、CTの有用性が重視されている<sup>7)8)</sup>。本症例でも超音波検査、腹部CTにより腫瘤性病変の存在は確認できた。しかし、消化器症状が見られないため小腸造影は行われず、開腹によりようやく診断できた。不正性器出血を主訴としたため、手術時卵巢の変化を認めなかったが、診断のため卵巢楔状切除術を施行した。組織学的にも変化がなく、機能性出血と考えられた。

鑑別すべき疾患として血管腫があげられるが、嚢胞の内容物が乳び様であり、血球成分をほとんど含まなかったこと、嚢胞の内皮細胞が免疫組織学的にFactor VIII陰性であったことより、この嚢胞がリンパ管

Fig. 3 Gross appearance of the surgical specimen. The tumor was 40×20cm in size.

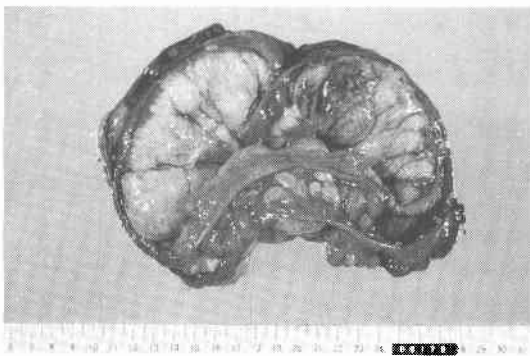


Fig. 4 Histological feature showing multiple dilated lymphatic canals continuously extending in the submucosa, subserosa and into the mesentery (Hematoxylin and eosin; ×5).

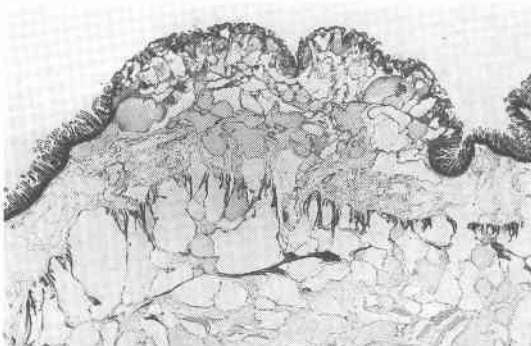


Table 1

|       |                                       |                |              |
|-------|---------------------------------------|----------------|--------------|
| WBC   | 4100 /mm <sup>3</sup>                 | T-P            | 6.1 g/dl     |
| RBC   | 432×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>  | UA             | 4.3 mg/dl    |
| Hb    | 12.8 g/dl                             | BUN            | 10 mg/dl     |
| Ht    | 39.3 %                                | Cr             | 0.7 mg/dl    |
| PLT   | 27.9×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup> | CEA            | <1.0 ng/ml   |
|       |                                       |                | (<2.5)       |
| GPT   | 5 IU/ℓ                                | CA19-9         | 27 U/ml(<29) |
| GOT   | 15 IU/ℓ                               | CA125          | 19 U/ml(<30) |
| CPK   | 83 U/ℓ                                |                |              |
| T-Bil | 0.6 mg/dl                             | Vaginal smears | Class II     |
| T-CHO | 172 mg/dl                             |                |              |
| T-G   | 79 mg/dl                              |                |              |

由来であると考えられた。リンパ管腫は組織学的に単純性、海綿状、嚢胞性に分類されているが、同一標本においてもこれらが混在する例も見られる<sup>9)</sup>。嚢胞状で膨張性の発育形式をとるものは外科的に完全に切除可能である。しかし、海綿状で浸潤性の発育形式をとるものは完全切除が困難であり<sup>10)</sup>、再発の報告もみられる<sup>11)</sup>。このようなびまん型にかぎり lymphangiectasia とする分類もあり<sup>12)</sup>、臨床病理学的特徴が異なると考えられている<sup>13)</sup>。本症例でも小腸および小腸間膜に海綿状リンパ管腫がみられた。正常組織も含めて、十分に切除しえたと考えられるが、今後十分な経過観察が必要と思われた。

#### 文 献

- 1) Raiford TS: Tumor of the small intestine. Arch Surg 25 : 122-177, 1932
- 2) 八尾恒良, 日吉雄一, 田中啓二ほか: 最近10年間(1970-1979)の本邦報告例の集計からみた空・回腸腫瘍。胃と腸 16 : 1049-1056, 1981
- 3) 星加和徳, 内田純一, 木原 彊: 消化管のX線像 1. 小腸リンパ管腫。総合臨 35 : 2223-2228, 1981
- 4) 中村正樹, 菊池直人, 星野清志ほか: 内視鏡的ポリペクトミーにて切除した回腸リンパ管腫の1例。Gastroenterol Endosc 28 : 2616-2620, 1986
- 5) 中野 浩, 渡辺 真, 高野映子ほか: 小腸X線検査で異常所見を捉えた腸間膜リンパ管腫の1例。Gastroenterol Endosc 30 : 148-152, 1988
- 6) 榎本 準, 山下義信, 本田雅之ほか: 小腸および小腸間膜に発生したリンパ管腫の1例。日消外会誌 21 : 945-948, 1988
- 7) 高橋修一, 近江忠尚, 吉田秀一郎ほか: 6年間の下血・貧血ののちUSおよびCTで診断のついた小腸腸管膜海綿状リンパ管腫の1治験例。青森中病医誌 28 : 235-239, 1983
- 8) 樋口悦美, 武藤茂生, 樋口健弥ほか: 腸管膜嚢腫の1例。小児臨 37 : 321-324, 1984
- 9) Kissane JM: Anderson's pathology. Edited by Kissane JM. 8th edition. Mosby Company, St. Louis, 1985, p1625
- 10) 黒川善栄, 神谷順一, 桐岡智二ほか: 臍頭十二指腸切除術にて切除しえた後腹膜リンパ管腫の1例。日外会誌 88 : 222-226, 1987
- 11) Raszkowski HJ, Rehbock DJ, Cooper FG: Mesenteric and retroperitoneal lymphangioma. Am J Surg 97 : 363-367, 1959
- 12) Beradi RS: Lymphangioma of the large intestine, report of a case and review of the literature. Dis Colon Rectum 17 : 265-272, 1974
- 13) 岩尾 忠, 山下文彦, 窪山信一ほか: S状結腸のLymphangiectasiaの1例。Gastroenterol Endosc 29 : 328-332, 1987

### A Case of Lymphangioma of the Ileum and its Mesentery, Suspected of an Ovarial Dermoid Cyst

Teruo Kiyama, Masahiko Onda, Takashi Mizutani, Tadashi Kobayashi, Yuji Okihama,  
Norio Matsukura, Akira Tokunaga, Noritake Tanaka, Yukichi Moriyama,  
Tsutomu Araki\* and Goro Asano\*\*

First Department of Surgery, \*Department of Gynecology and \*\*Second Department of Pathology,  
Nippon Medical School

A 26-year-old woman consulted a gynecologist because of lower abdominal pain and an abnormal uterine discharge, and was diagnosed as having an ovarian dermoid cyst. She was admitted to the gynecological department of our hospital. An over fist sized-tumor was palpable in touch with the uterus by the vaginal examination, and the ultrasonography and computed tomography of the abdomen revealed an abnormal and heterogenous mass, measuring 8 × 4 cm, of which the margins were not clear, in the lower abdominal cavity. Exploratory laparotomy revealed a diffuse and polycystic mass with chylous fluids in the ileum, 10 to 50 cm distant from the anal end of the ileum, and also in the iliac mesentery. The ileectomy and an edge resection of the ovary was performed. Histological examination of the specimen showed cavernous lymphangioma. Lymphangioma is rarely encountered in the small intestine and is difficult to diagnose before surgery because of the anatomical features of the intestine. A case of lymphangioma of the ileum and its mesentery, suspected of an ovarian dermoid cyst was reported.

**Reprint requests:** Teruo Kiyama First Department of Surgery, Nippon Medical School  
1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo 113 JAPAN