

術前診断しえた後腹膜海綿状リンパ管腫の1例

北海道消化器科病院外科¹⁾, 同 内科²⁾, 北海道大学第2外科³⁾

森田 高行¹⁾³⁾ 藤田 美芳¹⁾³⁾ 池永 治親¹⁾³⁾ 宮坂 祐司¹⁾³⁾
井上 善之²⁾ 田辺 達雄²⁾ 宮坂 史路²⁾ 西沢 正明²⁾
堀田 彰一²⁾ 下沢 英二³⁾ 加藤 紘之³⁾ 田辺 達三³⁾

後腹膜海綿状リンパ管腫の1例を経験した。症例は40歳男性で、腹部圧迫感を主訴として来院し、超音波検査にて蜂巢状構造を呈する巨大な腹部腫瘤を認めた。Computed tomography では左横隔膜下から腓後方を通り左腎下極に及ぶ内部構造均一な嚢胞状腫瘤としてとらえられ、血管造影では血管成分の乏しい腫瘤と考えられた。超音波ガイド下穿刺にて乳糜を吸引した。

上記より後腹膜腫瘍(リンパ管腫を強く疑う)の診断にて摘出術を施行した。大動脈周囲にて強固に癒着し腫瘍の辺縁は不明瞭となっていた。切除された腫瘤はスポンジ様の構造・弾性を呈し、病理組織学的にリンパ管腫と診断された。

後腹膜リンパ管腫の本邦報告例は約100例で、そのうち海綿状リンパ管腫は7例とまれな疾患であり、また浸潤性の発育・悪性化の問題点もあり文献的考察を加え報告した。

Key words: retroperitoneal tumor cavernous lymphangioma, preoperative diagnosis

はじめに

後腹膜腫瘍のうちリンパ管腫の占める割合は非常に低く、そのなかでも海綿状構造を呈するリンパ管腫はきわめてまれで、本邦報告例でも10例に満たない。今回われわれは典型的な海綿状構造を呈する後腹膜リンパ管腫を経験したので、その画像上の特徴・成因などに関し文献的考察を加え検討した。

症 例

患者：40歳，男性。

主訴：腹部圧迫感。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成2年6月，軽度の腹部圧迫感を認め近医を受診。腹部超音波検査にて蜂巢状構造を呈する巨大腹部腫瘤を指摘され当院を紹介される。

入院時現症：特記すべきことなし。

入院時検査所見：末梢血，血液生化学，腫瘍マーカーともに異常を認めない。

腹部超音波所見：内部エコーが不均一で，微細蜂巢状構造を呈する部分を主体とする巨大な腫瘤を認めた(Fig. 1)。壁は薄く，周囲臓器との境界も不明瞭であるが，腓・脾の後方に存在した。

Fig. 1 Ultrasonogram, showing a large honeycomb-structured mass.

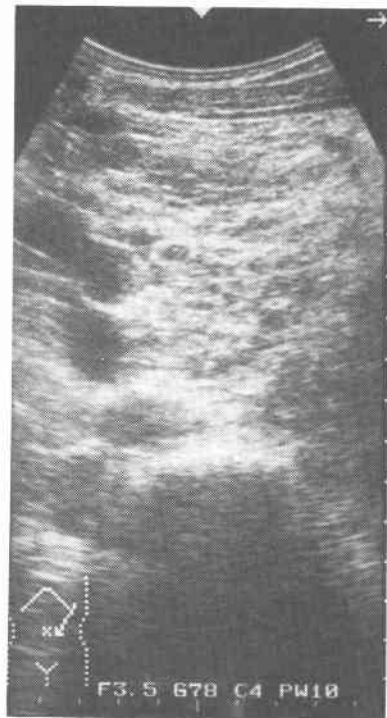
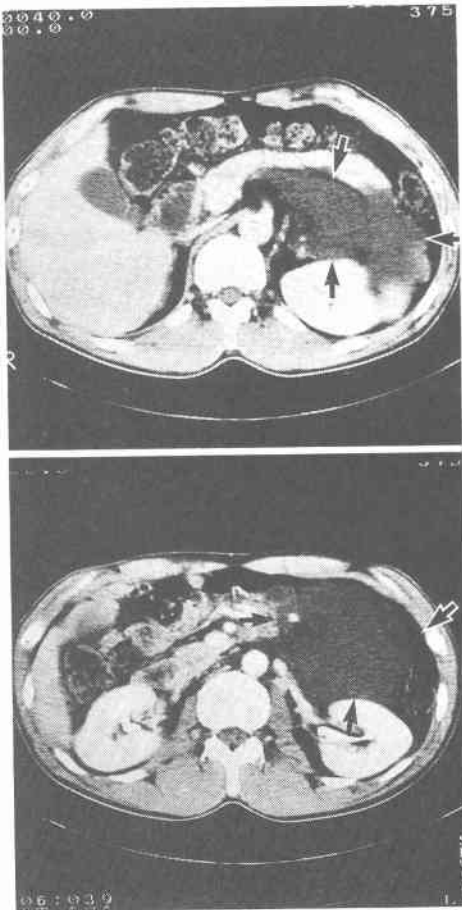


Fig. 2 Contrast-enhanced CT scan, demonstrating a large homogeneous cystic mass. A : at the level of the pancreas. B : at the level of the left renal vein.



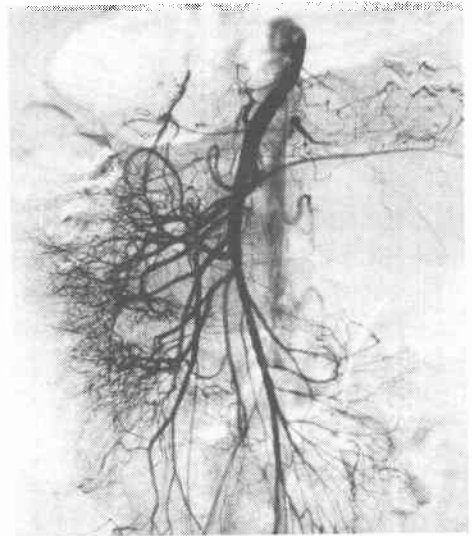
腹部 computed tomography (以下 CT) 所見：左横隔膜直下より左腎下極に及ぶ内部構造均一な嚢胞性病変を認める (Fig. 2)。嚢胞壁は薄く、大動脈周囲にて境界が不明瞭となる。同病変は造影剤にて、enhance されなかった。

消化管造影：胃は腫瘤により右方へ圧排され、小腸全体も右方へ偏位していた。

腹部血管造影：上腸間膜動脈造影にて左腹部に巨大な avascular area を認め、動脈よりの分枝はすべて右方へ偏位している (Fig. 3)。

腹部 magnetic resonance imaging (以下 MRI) : T₁ 強調画像にて low signal, T₂ 強調画像にて high signal となる腫瘤として認められ、隔壁の描出がみられた。また内側の大動脈周囲にて境界が不明瞭となる (Fig.

Fig. 3 Superior mesenteric arterial angiography shows a deviation of the vessels and a hypovascular tumor is suspected.



4)。

逆行性膀胱造影：膀胱の狭窄・閉塞を認めず、腫瘤との交通も認めない。

超音波ガイド下穿刺：乳白色漿液性貯留液を吸引した。細胞診は class 1 であった。

手術所見：平成 2 年 7 月 10 日、手術を施行した。結腸間膜を通し、乳白色を呈する巨大な嚢胞性腫瘤を透視した。脾・脾を脱転し腫瘤を周囲組織より剝離したが、腹・背・外側の剝離は比較的容易であったが、内側において左副腎および大動脈周囲の結合組織に強固に癒着し、腫瘤との境界も不明瞭となっていた。そのため左副腎を合併切除し、大動脈周囲の結合組織とともに腫瘤を摘出した。

摘出標本肉眼所見：腫瘤は 21×13×12cm 大で、重量は約 700g であった。断面は微細な蜂巢状構造を呈し、スポンジ様の弾性をもち、内部に乳糜を含んでいたが、色調は尾側へいくにつれ赤調を強くし血液の混入を思わせた (Fig. 5)。

病理組織学的所見：Hematoxylin-eosin 染色では、内面を一層の内皮細胞によりかこまれた不整形のリンパ管の増生を認め、内部に好酸性のリンパ液を認めた。また結合組織内には平滑筋とリンパ濾胞を認めた。以上より後腹膜海綿状リンパ管腫と診断した (Fig. 6)。

考 察

後腹膜腫瘍のうちリンパ管腫の占める割合は、

Fig. 4 A : T₁-weighted MR image, showing a low signal mass. B: T₂-weighted MR image, showing a high signal and multiloculated mass.

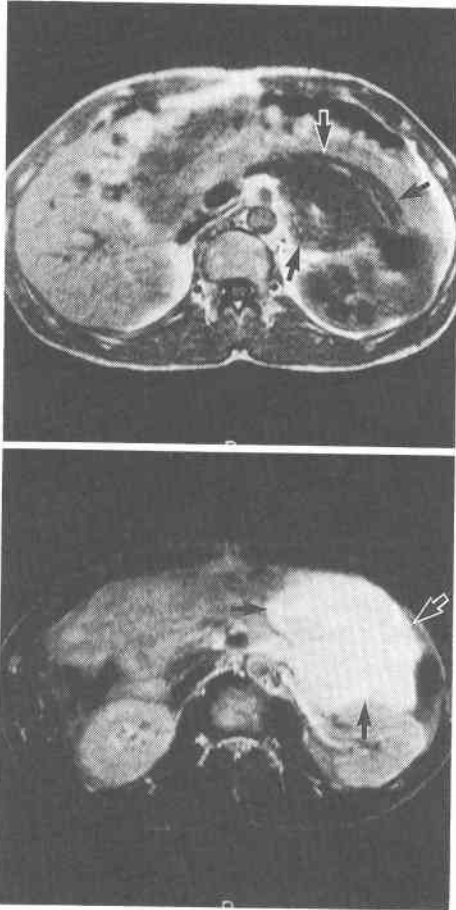
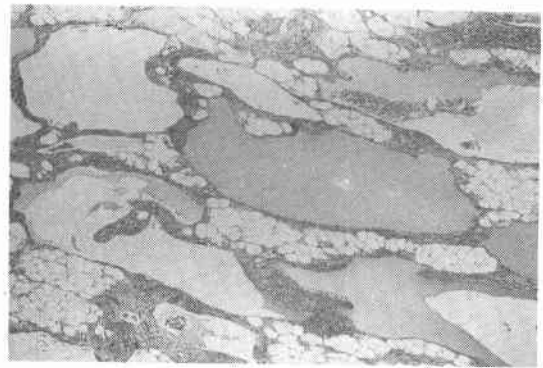


Fig. 5 Gross surgical specimen of the resected retroperitoneal mass with minute multiple locules (honeycomb-like) and chyle.



Fig. 6 Microscopic view revealed lymphatic duct lumens lined by a monolayer of endothelial cells (HE, ×10).



Scanlan¹⁾らの集計によると688例中5例, 0.7%とまれな疾患である。リンパ管腫の発生部位からみると, その95%は頭頸部・腋窩・体幹表面で, 後腹膜に発生するのは1%以下とされている²⁾³⁾。

リンパ管腫は病理組織学的に, (1)単純性リンパ管腫, (2)海綿状リンパ管腫, (3)嚢胞状リンパ管腫の3つに分類されている。しかし, これらの分類に関しては, 相互に移行型がみられるとしたり, また発生学的に海綿状リンパ管腫としてすべてのリンパ管腫が発生した後に周囲組織の状況により嚢胞状発育を呈したり, 海綿状発育を呈するとする考えも存在する⁴⁾。つまり, 頸部や腋窩・縦隔のように疎な結合組織中に発生したものは嚢胞状発育をとり, 頬部・舌・その他口腔内などの密な結合組織中に発生したものは海綿状発育

をとるとするものである。その点からも, 後腹膜に発生する場合は後腹膜腔内に広い発育スペースをもち, 嚢胞状リンパ管腫として発育する機会が多いと推定されている。実際の報告例の集計をみると, Rauch⁵⁾, Koshy⁶⁾は42例の後腹膜リンパ管腫のうち海綿状リンパ管腫は4例のみに, また相馬ら⁷⁾の本邦報告例の統計においても85例中7例に海綿状リンパ管腫を認め

るのみである。しかし、われわれの経験した症例は、後腹膜の極めて疎な組織中に進展したにもかかわらず、全体として典型的なスポンジ様の海綿状構造を呈し、腫瘍発生的な考察を加えるうえで、興味ある症例であった。

発育形式としては、海綿状リンパ管腫の場合は浸潤性の発育を呈する場合が多く、Billら⁴⁾は海綿状リンパ管腫を完全に切除するためには周囲組織を含めた切除が必要であるとし、また黒川ら⁸⁾は臍頭十二指腸切除術により切除したリンパ管腫の後腹膜から十二指腸固有筋層内への浸潤を報告している。本例においても、大動脈周囲において腫瘍と結合組織の境界が不明瞭となり、大動脈周囲神経叢の切離や副腎の合併切除を必要とした。

治療方針は、外科的な完全切除が基本と考えられている。症状として腹部圧迫感や便通異常を伴うものはもちろん、部位によっては胆管圧迫症状を呈したり、また出血・感染などの合併症を伴うことも多く切除が必要となる。海綿状リンパ管腫の場合には悪性度の報告例もあり⁹⁾、また再発の危険性も大きい⁴⁾ことから可能な限り完全切除を試みるべきと思われる。

後腹膜リンパ管腫を術前に診断することは難しいとされ、多くは後腹膜腫瘍の術前診断にて手術を施行されている。本症例はまずエコーにて特徴的な蜂巢状構造を呈し、さらにエコー下穿刺にて乳糜液を証明でき、術前診断に非常に有用であった。しかし術前に穿刺吸引にて乳糜液を証明できる症例は極めてまれで、検索しえた範囲内では本邦報告例は見当らなかった¹⁰⁾¹¹⁾。

後腹膜腫瘍の鑑別診断として、このリンパ管腫を常に念頭に入れることはもちろん、治療に際しても、特に海綿状リンパ管腫においては完全摘出されねばなら

ないことより、その画像上の特徴を把握することが必要と考えられる。

文 献

- 1) Scanlan DB: Primary retroperitoneal tumors. J Urol 81: 740, 1959
- 2) Singh S, Baboo ML, Pathak IC: Cystic lymphangioma in children. Surgery 69: 947-951, 1971
- 3) Wayne ER, Burrington JD, Campbell JB et al: Retroperitoneal lymphangioma: An unusual cause of the acute surgical abdomen. J Pediatr Surg 8: 831, 1973
- 4) Bill AH Jr, Sumner DS: A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. Surg Gynecol Obstet 120: 79-86, 1965
- 5) Rauch RF: Retroperitoneal lymphangioma. Arch Surg 78: 45-50, 1959
- 6) Koshy A, Tandon RK, Kapur BL et al: Retroperitoneal lymphangioma. Am J Gastroenterol 69: 485-490, 1978
- 7) 相馬光宏, 北川 隆, 岡野重幸ほか: 後腹膜リンパ管腫の2例. 臨放線 33: 1147-1150, 1988
- 8) 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リンパ管腫の1例. 日外会誌 88: 222-226, 1986
- 9) Henzel CJH, Pories MWJ, Burget CDE et al: Intra-abdominal lymphangiomata. Arch Surg 93: 304-308, 1966
- 10) Robert CS, Carter BL, Bankoff MS et al: Cystic lymphangiomas: CT diagnosis and thin needle aspiration. Br J Radiol 57: 424-426, 1984
- 11) Davidson AJ, Hartman DS: Lymphangioma of the retroperitoneum: CT and sonographic characteristics. Radiology 175: 507-510, 1990

A Case of Preoperatively Diagnosed Retroperitoneal Cavernous Lymphangioma

Takayuki Morita¹⁾²⁾, Miyoshi Fujita¹⁾³⁾, Yuuji Miyasaka¹⁾³⁾, Haruchika Ikenaga¹⁾³⁾, Yoshiyuki Inoue²⁾,
Tatsuo Tanabe²⁾, Fumiji Miyasaka²⁾, Masaaki Nishizawa²⁾, Shouichi Horita²⁾,
Eiji Shimozawa³⁾, Hiroyuki Kato³⁾ and Tatsuzo Tanabe³⁾

Department of Surgery¹⁾ and Internal Medicine²⁾, Hokkaido Gastroenterology Hospital
Second Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine³⁾

A case of retroperitoneal cavernous lymphangioma is reported. A 49-year-old man was admitted because of a feeling of abdominal pressure. An abdominal US study revealed a large honeycomb-like mass, and a CT showed a homogeneous cystic mass, detected as an avascular area on angiography. US-guided needle aspiration yielded milky fluid. Based on the results of these examinations, a diagnosis of retroperitoneal tumor (most likely lymphangioma) was made and surgery was performed. The surgical specimen had a sponge-like structure and was diagnosed as

lymphangioma histologically. The patient is well 15 months after surgery. Although approximately 100 cases of retroperitoneal lymphangioma were reported in Japan, only 7 cases have been of the cavernous type. Cavernous lymphangioma is characterized by infiltration and has a potential for malignant degeneration. Consequently total resection should be performed.

Reprint requests: Takayuki Morita Department of Surgery, Hokkaido Gastroenterology Hospital
1-1 Honchou, Higashi-ku, Sapporo, 065 JAPAN
