小網リンパ管腫の1例

国立松本病院外科

伊藤 研一 久米田茂喜 岩浅 武彦

堀 利雄 牧内 正夫

小網原発のリンパ管腫を経験したので報告する。症例は37歳の女性,腹部膨満感を主訴に来院。腹部超音波検査,腹部 CT 検査で肝左葉と連続した多房性腫瘤と考えられたため,術前巨大肝嚢腫と診断し手術を施行した。しかし,開腹すると肝とは完全に独立し,胃小彎に付着した多房性腫瘤が認められ,小網原発の嚢腫であった。摘出標本は19.5×13.5×10.0cm,重量940gの巨大な嚢腫であり,病理組織学的にはリンパ管腫と診断された。小網原発のリンパ管腫は比較的まれであり,本邦では自験例も含め,現在までに22例報告されているにすぎない。腹部 CT や超音波検査などの画像診断で嚢腫の所見が比較的はっきりしているにもかかわらず,術前に確定診断に至った症例は報告例の中でも1例しかなく,認識の不十分な疾患と考えられる。文献的に本疾患の特徴を考察したので,併せて報告した。

Key word: lymphangioma of the lesser omentum

はじめに

リンパ管腫は主として小児の頸部に発生する良性腫瘍で、腹腔内臓器に発生することはまれとされている¹⁾. われわれは、術前の画像診断で巨大肝嚢胞と診断した小網原発のリンパ管腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者:37歳,女性. 主訴:腹部膨満感.

家族歴:特記すべきことなし。

既往歷:32歳時,帝王切開術施行。

現病歴:1991年5月下旬より腹部膨満感を訴えるようになり、6月5日当院内科を受診。触診および超音波検査で腹部腫瘤を指摘され、精査のため6月10日入院した。

入院時現症:身長157.5cm, 体重42.5kg. 貧血, 黄疸を認めず. 上腹部正中から右側にかけ弾性軟な手拳大の腫瘤を触知した.

入院時検査成績:貧血と血清 Fe の低下が認められたほかには、血液一般および生化学検査では異常は認められなかった。血清の腫瘍マーカーも正常範囲内であった。また、超音波ガイド下に採取した嚢胞内液に

ついても腫瘍マーカーを数種類調べたが、高値を示したものはなかった。嚢胞内液の細胞診の所見は、リンパ球が主体で腫瘍成分は認められず class II であった (Table 1).

腹部超音波検査所見:肝のS3からS5の背側下方に 内部に隔壁をもつ17×5cm 大の嚢胞性腫瘤が認められ、肝嚢胞が疑われた(Fig. 1)。

腹部 CT 所見:肝との境界不明瞭な18×14×7cm の巨大な多房性腫瘤が認められ肝左葉外側区域より発生した肝嚢胞が疑われた (Fig. 2).

腹部血管造影所見:左胃動脈および胃十二指腸動脈

Fig. 1 Ultrasonography shows a cystic mass adjacent to the left lateral segment of the liver.

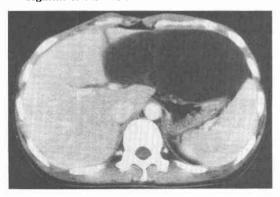


<1992年7月6日受理>別刷請求先:伊藤 研一 〒399 松本市芳川村井町1209 国立松本病院外科

Table 1 Laboratory data on admission

Hematological e	xamination	1				
	RBC	$413\times10^4/\text{mm}^3$	Hb	8.8g/dl	Ht	28.7%
	WBC	$4.250/\text{mm}^3$	Plt	$254.000/\text{mm}^3$		
Blood chemistry	test					
	TP	6.2g/dl	Alb	3.8g/dl	T. Bil	0.4mg/dl
	ALP	86U/l	γGTP	7U/l	GOT	10U/l
	GPT	9U/l	ZTT	6.2U	ChE	0.72pH
	LDH	201U/l	CPK	38U/1	Amy	51U/l
	BUN	11mg/dl	Cr	0.7mg/dl	UA	2.0mg/dl
	Na	142mEq/l	K	4.0 mEq/l	C1	110mEq/1
	Ca	8.9 mg/dl	P	$3.6 \mathrm{mg/dl}$	Fe	$10\mu g/dl$
	TC	152mg/dl				
Tumor markers	(blood)					
	AFP	2.5ng/dl (<20)	CEA 1	1.7 ng/ml (< 5.0)		
	CA19-9	10.8U/ml (<60)	CA125	45U/ml (<50)		
	CA15-3	15U/ml (<30)				
Tumor markers	(intracystic	c fiuid)				
	CEA	3.6ng/ml	CA19-9	18.0U/ml		
	CA125	21U/ml				
Cytologic exam	ination(int	racystic fluid)				
		: microlymphocyt	e(++), R	BC(+), macroph	nage(+)	

Fig. 2 Abdominal computed tomography shows a large multilocular cyst adjacent to the lateral segment of the liver.



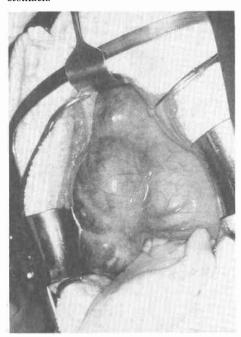
から右胃大網動脈の,圧排伸展が認められ,大きな腫瘤の存在が示唆された。明らかな腫瘍濃染像は認められなかった。

内視鏡的逆行性胆管膵管造影(ERCP)所見:左肝内 胆管の上方への圧排と胃の左方への圧排が認められ、 胃の小彎に接した腫瘤の存在が考えられた。

諸検査所見より肝嚢胞が最も疑われたが、肝嚢胞腺 癌なども否定できないと判断し、巨大肝嚢胞の診断で 7月15日手術施行した。

手術所見:上腹部正中切開で開腹すると,胃小彎に

Fig. 3 Operative finding shows a large cystic tumor adherent to the lesser curvature of the stomach.



付着し肝とは独立した大きな腫瘤が認められた。小網 原発の嚢胞性腫瘤と考えられたが、腫瘤と周囲組織と

Fig. 4 Gross appearance of the multilocular cyst originated from the lesser omentum.



Fig. 5 Histopathological findings. (H.E. $\times 20$). The flat endothelial linings are seen.

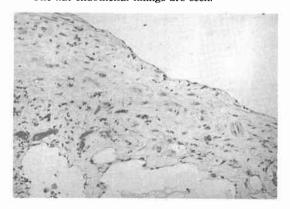


Table 2 Reported cases of lymphangioma of the lesser omentum in Japan

No.	Author	Date	Age	Sex	Symptoms	Preoperative diagnosis	tumor size(cm) and weight(g)
1	Nishida	1936	74	F	Abdominal tumor, abdominal pain, vomiting	Ovarian cyst	37.8×42.0cm 1,000g
2	Kii	1958	42	F	Abdominal tumor	Mesenteric tumor	450g
3	Kumagai	1965	14	M	Abdominal distension	Mesenteric cyst	20.5×10.8×6cm
4	Yukawa	1965	52	M	Upper abdominal tumor, chest oppression	Intraperitoneal tumor	fist size 300g
5	Watanuki	1966	13	M	Abdominal tumor		22.5×10.8×6cm
6	Imai	1973	4	M	Abdominal pain, fever, vomiting	Abdominal tumor, acute abdomen	15×11×6cm 700g
7	Suzuki	1976	61	F	Jaundice, abdominal full- ness, nausea	Gallbladder cancer, mesenteric tumor	child head size hen's egg size
8	Ichiya	1976	38	M	Abdominal tumor, epigas- tralgia	Extra-stomach tumor	10×8×8cm
9	Sugihara	1979	44	F	Upper abdominal fullness epigastralgia	Pancreatic cyst	child head size
10	Hamaguchi	1982	36	M	Abdominal distension		28×25×9cm 1,720g
11	Miyagawa	1982	3	M	Vomiting, emaciation	Intraperitoneal cyst or common bile duct cyst	
12	Tsukidate	1982	1	M	Abdominal distension	Mesenteric cyst	
13	Mieno	1983	58	F	Upper abdominal discomfort	Lesser omental tumor	15×10×10cm 500g
14	Chiba	1984	2	M	Fever, abdominal pain	Acute appendicitis with perityphlitis	24×18×13cm 531g
15	Narita	1986	70	M	Epigastral discomfort	Pancreatitis or pancreatic cyst	9×9×5cm 170g
16	Tamura	1987	62	M	Upper abdominal fullness	HCC with cystic lesion	6×7×3cm
17	Tanaka	1988	37	F	Epigastralgia, nausea	Cystic disease of the pancreas	①8.0×5.5×6.0cm, 90g ②3.0×1.5×1.0cm
18	Inaba	1988	55	F	Upper abdominal tumor	Extra-stomach cyst	21×11cm
19	Okuda	1988	25	M	Abdominal distension	Intraperitoneal cystoma	7,000g
20	Furuhata	1988	27	F	Right lower abdominal pain	Torsion of the rt. ovarian cyst	
21	Sumi	1989	55	M	Abdominal distension	Lymphangioma of lesser omentum	8×7×5cm
22	Our case	1991	37	F	Abdominal fullness	Liver cyst	19.5×13.5×10cm 940g

の癒着は軽度で、左右の胃動脈を一部処理したのみで巨大な腫瘤を容易に摘出することができた(Fig. 3).

摘出標本所見:腫瘤は19.5×13.5×10.0cm, 重量 940g. 暗赤色で表面平滑, 多房性で淡褐色透明な内容 液をいれていた (**Fig. 4**).

病理組織学的所見:被膜の一部に扁平または立方上皮がみられ、平滑筋も認められた。被膜成分中にはリンパ組織の発達が目立ち、一部ではコレステリン結晶の析出も認められ、リンパ管腫と診断された(Fig. 5)。

術後経過:順調に経過し術後第15病日退院した。

考 察

リンパ管腫は単純性 (lymphangioma simplex)、海 綿状(lymphangioma cavernosum), 囊胞性(lymphangioma cysticum) に分類されるが、いずれも乳幼児に 多く通常悪性化することはないと考えられている1)。 リンパ管腫の発生には、 先天的な発生異常によるリン パ管閉塞によるとする説、リンパ組織の腫瘍性増殖と する説、外傷に基づく機械的閉塞とする説などがある が定説はない3)8)16)17)19). 頸部が好発部位であり, 腹腔内 臓器から発生することは比較的まれで、小網原発のリ ンパ管腫となると、検索しえた限り、本邦では自験例 を含めて現在までに22例報告されているにすぎな い^{2)~22)}. 本邦報告例についてまとめたのが **Table 2** で ある. 年齢は1歳から74歳にわたり, 平均36.8歳で, 男性14例、女性9例とやや男性に多い傾向を示した。 臨床症状としては、腹部腫瘤、腹部膨満感などの症状 の他に, 腫瘤の増大に伴う他臓器の圧迫によると考え られる、種々の消化器症状が報告されている。 また, 茎捻転、嚢腫内出血などにより急性腹症を呈した症例 も報告されている⁷⁾¹⁵⁾²¹⁾、術前診断では、腹部超音波検 香. 腹部 CT 検査により多房性嚢腫の質的診断は容易 である^{13)14)16)~20)}、また、小網原発の場合には、胃 X 線 検査での胃小鸞の圧排像が多くの症例で報告されてお り、さらに、ERCP や点滴静注式胆道造影が施行され た症例では胆嚢や総胆管の圧排所見も認められてい る5)6)8)~10)16)~19). 血管造影では腫瘤辺縁の動脈の圧排 伸展像が認められ、これらの所見が腫瘤の局在診断に 有用であると報告されている9)18)~20)。しかし、小網リン パ管腫は頻度が少ないこともあり, 術前に確定診断に 至ることは極めて困難で、術前に診断しえたとの報告 は角ら22)の1症例があるにすぎず、本疾患に対する認 識の不十分さが示唆される。自験例でも術前の諸検査 において、過去に報告されているのと同様な小網リン パ管腫に特徴的な所見が得られてはいたが、腹部超音 波検査および CT で肝との連続性が強く疑われ,また本疾患に対する認識不足もあり,術前,巨大肝嚢胞と診断する結果となった.腹腔内嚢胞性腫瘤の鑑別診断のひとつとして,本疾患の存在を念頭におく必要があろう.自験例の他に最近の 2 症例で,超音波ガイド下穿刺吸引細胞診が施行されているが,いずれもリンパ球が主体で腫瘍細胞は認められておらず,これは本疾患を診断する上で今後有用な所見になりうると考えられる17019)

治療は全症例で小網の部分切除または全切除により 比較的容易に腫瘍の摘出が行われている。予後は良好 であり、再発、死亡についての報告は認められていな

最後に、本症例の病理組織学的所見について御教示頂いた、信州大学医学部第1病理学教室重松秀一教授に深謝致 します

本症例報告の要旨は,第9回日本消化器病学会甲信越地 方支部例会にて発表した。

文 献

- 1) 石井良治, 馬場正三: リンパ管の外科. 石川浩一, 木村忠司, 佐野圭司ほか:編. 現代外科学大系. 第 18 巻. 末梢神経・リンパ系の外科. 中山書店, 東京, 1973, p323-363
- 2) 西田謹一:臨床診断に卵巣嚢腫とせらる手術後診断に於て小網より発生せる嚢腫性淋巴管腫なりし 1例,産と婦 4:281-283,1936
- 3) 喜井清之助, 栗田 弘, 大前典敏:小綱に発生せる 淋巴管嚢腫の1例。日臨外医会誌 14:265-266, 1959
- 4) 熊谷公明: 腸間膜嚢腫の1例(小網に発生したリンパ管嚢腫), 小児科診療 28:1369, 1965
- 5) Yukawa K: Ein Fall von lymphangiektatischer Kleinnetzzyst. Yonago Acta Med 9: 103-108, 1965
- 6) 綿貫 詰,渡辺輝邦,高田準三ほか:腹部網膜嚢腫 の2治験例について.日小児外会誌 2:155,1966
- 7) 今井利賢,長岡淳一,椎名弘忠:小網膜嚢腫茎捻転 の1治験例と本邦網膜嚢腫報告例の統計的観察. 外科 35:575-579, 1973
- 8) 鈴木宏文, 松尾 聡, 平山廉三ほか:小網嚢胞の 1 例、外科診療 72:558-560, 1976
- 9) 一矢有一, 鴛海良彦, 蓮尾金博ほか: 小網に発生したリンパ管腫の1例-本邦における小網腫瘤26例の検討-. 広島医 29:406-412, 1976
- 10) 杉原登司夫,佐々木宏之,竹内絢子ほか:小網に発生したリンパ管嚢腫の1例.島根医 6:55-60, 1979
- 11) 浜口元雄,山脇忠晴,弥富 章ほか:小網に発生し た巨大なリンパ管腫の1例,日消病会誌 79:

- 1016, 1982
- 12) 宮川貞昭,金野則弘,山川達郎ほか:小網嚢腫の1 例、日消病会誌 79:2166, 1982
- 13) 月舘幸一, 小島勢二, 岩瀬勝彦ほか: 小網嚢腫の1例. 小児診療 45, 1740, 1982
- 14) 三重野寛, 林 幸三, 土橋敬弘ほか: 小網原発性の う腫の1例, 広島医 36:1223, 1983
- 15) 千葉庸夫, 来生 徹, 伊倉弘喜ほか:幼児にみられた巨大な小網リンパ嚢腫の1例。日小児外会誌20:885-887、1984
- 16) 成田達彦, 大高克彦, 竹島英介ほか:高齢者小網嚢 胞の1例, 臨外 41:1201-1203, 1986
- 17) 田村 智, 岡崎和一, 森田雅範ほか: Small liver cancer を合併した小網リンパ管腫の1例. 日消病会誌 84:1325-1330. 1987

- 18) 田中俊司, 藤本泰久, 沢田鉄二ほか:小網に発生した嚢胞状リンパ管腫 (chylous cyst) の 1 例。日消外会誌 21:1130-1133, 1988
- 19) 稲葉征四郎, 近藤雄二, 久保速三ほか: 小に発生したリンパ管嚢腫の1例。日臨外医会誌 49: 1267-1271、1988
- 20) 奥田哲也,未永裕之,鈴木祐一ほか:巨大な小網リンパ管腫嚢胞の1例と本邦報告例の検討。日臨外医会誌 50:1635-1639,1989
- 21) 古畑 久,深瀬知之,岩佐隆文ほか:小網に発生したリンパ管腫の1例.日臨外医会誌 49: 1301-1302. 1988
- 22) 角 泰廣, 鬼束惇義, 後藤全宏ほか: 小網リンパ管 腫の1例, 岐阜大医紀, 37:1009, 1989

A Case of Lymphangioma of the Lesser Omentum

Ken-ichi Ito, Shigeyoshi Kumeda, Takehiko Iwasa, Toshio Hori and Masao Makiuchi Department of Surgery, Matsumoto National Hospital

We report a case of lymphangioma of the lesser omentum with a review of the literature. The patient was a 37-year-old woman who visited the hospital with a complaint of abdominal fullness. Ultrasonography and computed tomography of the upper abdomen indicated a multilocular cyst extending from the left lobe of the liver. The patient was diagnosed as having a huge liver cyst, and laparotomy was performed. The operation disclosed a multilocular tumor which was not adherent to the liver but rather to the lesser curvature of the stomach. We considered that the tumor originated from the lesser omentum. The tumor was $19.5 \times 13.5 \times 10.0$ cm in size, 940 g in weight. Histopathological diagnosis revealed a lymphangioma. Lymphangioma of the lesser omentum is a relatively rare disease, and to date only 22 cases have been reported in the Japanese literature, including our case. There was only one case of lymphangioma diagnosed definitely before laparotomy, although typical findings are obtained from preoperative imaging diagnosis in most cases. Clinical aspects of these cases are also discussed in this paper.

Reprint requests: Ken-ichi Ito Department of Surgery, Matsumoto National Hospital 1209 Yoshikawamuraimachi, Matsumoto, 399 JAPAN