

小網リンパ管腫の1例

神戸大学第1外科学教室 (主任: 斎藤洋一教授)

塩谷 雅文 具 英成 長畑 洋司

小網リンパ管腫の1切除例を経験したので報告した。症例は56歳の女性で胆石症を合併しており、上腹部不快感を主訴として来院した。術前、腹部超音波検査、computed tomography 検査およびmagnetic resonance imaging 検査で網嚢内嚢腫と診断し、手術を施行した。開腹時所見としては、多房性の嚢腫が小網部を中心に存在し、小網原発と考えられた。摘出標本の大きさは12.0×5.0×3.4cm、重量150g、色調は暗赤色で平滑な被膜を有していた。術後の病理組織学的検討でリンパ管腫と診断された。小網リンパ管腫は比較的まれで、今回検索したかぎりでは本邦で25例が報告されたにすぎず、また術前診断がきわめて困難である。自験例を含め本邦報告例を集計し本疾患の診断および治療についての文献的考察を加えた。

Key word: lymphangioma of the lesser omentum

I. はじめに

小網原発のリンパ管腫は比較的まれで、著者らが検索したかぎりでは本邦では今までに25例が報告されているにすぎない^{1)~8)}、今回、術前には網嚢内嚢腫と考えられ、術後、病理組織学的に小網リンパ管腫と診断された1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

II. 症 例

患者: 56歳, 女性

主訴: 上腹部不快感

既往歴: 51歳時に子宮筋腫にて子宮摘出術を受けた。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1992年2月より上腹部不快感を自覚し近医にて慢性胃炎との診断で投薬治療を受けていた。同年10月頃下腹部持続痛が出現し近医を受診した。その際、腹部超音波検査で上腹部の fluid collection を指摘され精査、治療のため11月11日当科を紹介され入院となった。

入院時現症: 身長154cm, 体重54kg, 腹部は平坦で圧痛はなく、腫瘍は触知せず下腹部に正中切開創を認めた。

入院時検査成績: 血液生化学検査, 血清 carcinoembryonic antigen (CEA) など腫瘍マーカーに異常はなかった (Table 1)。

<1993年9月8日受理>別刷請求先: 具 英成
〒650 神戸市中央区楠町7-5-2 神戸大学第1外科

Table 1 Laboratory data on admission

Peripheral blood		Cyst fluid	
Hematological examination		Biochemical examination	
WBC	3,000 /mm ³	TP	5.4 g/dl
RBC	405×10 ⁴ /mm ³	Alb	3 g/dl
Hb	11.8 g/dl	T-Bil	0.8 mg/dl
Ht	37.4 %	Na	143 mEq/L
Plt	15.7×10 ⁴ /mm ³	K	3.5 mEq/L
Biochemical examination		Amy	60 IU/L
TP	6.5 g/dl	Lip	46 IU/L
T-Bil	0.6 mg/dl	Tumor markers	
GOT	20 IU/L	AFP	14 ng/ml
GPT	12 IU/L	CEA	3.5 ng/ml
ALP	168 IU/U	CA19-9	<7 U/ml
Amy	60 IU/L	Cytologic examination	
CRP	<0.27	Pap-class	II
Tumor markers		No atypical cell	
AFP	0 ng/ml	Erythrocytes	++
CEA	3.3 ng/ml	Lymphocytes	+++
CA19-9	<7 U/ml	Histiocytes	+++

嚢胞液の穿刺吸引細胞診: 嚢胞液は淡褐色透明で、沈渣は少数の赤血球を認めたが異形細胞は認めなかった。生化学検査では総蛋白5.4g/dl, アルブミン3.0g/dl と血清とはほぼ同様の値を示し、アミラーゼ, CEA は正常範囲内であった。

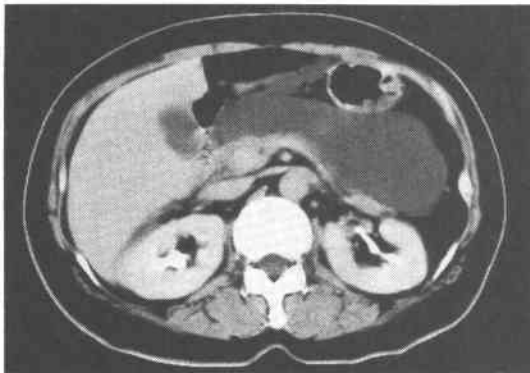
腹部超音波検査: 網嚢部に均一な low echoic mass を認めた (Fig. 1)。また、胆嚢内に結石像を1個認めた。

腹部 computed tomography (CT) 検査: 膵前面に

Fig. 1 Abdominal ultrasonographic findings. A huge, homogeneous cyst was demonstrated in the bursa omentalis.



Fig. 2 Abdominal computed tomographic findings. Note a huge cyst adjacent to the pancreas.



胆嚢頸部から脾門部に至る巨大な water density mass を認めた (Fig. 2).

腹部 magnetic resonance imaging (MRI) 検査：前額断にて網嚢内に、T1強調画像で low, T2強調画像で high な馬蹄形の cystic lesion を認め、内部に隔壁形成を思わせる索状物を認めた (Fig. 3)。以上より胆石症、および網嚢内嚢胞と診断した。

手術所見：複数の嚢胞を小網内に連続して認め大きさは大小不同で直径約1~12cm に及び、最大径のもの

Fig. 3 T1 weighted magnetic resonance imaging of the abdomen (frontal plane). A multilocular cyst with fibrous septums was demonstrated in the bursa omentalis.

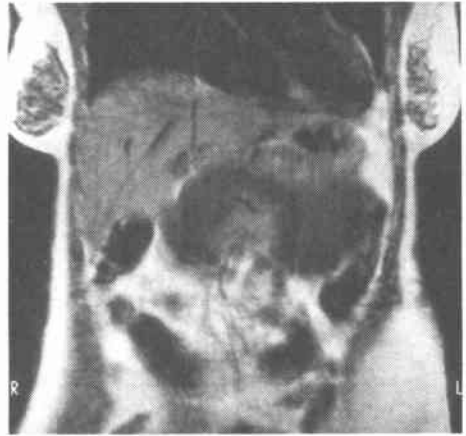


Fig. 4 A: Operative findings of a cyst. Arrows indicate the multilocular cysts locating in the lesser omentum. B: Macroscopic findings of the resected specimen.

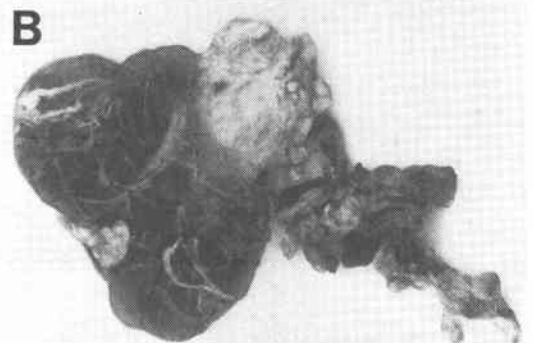
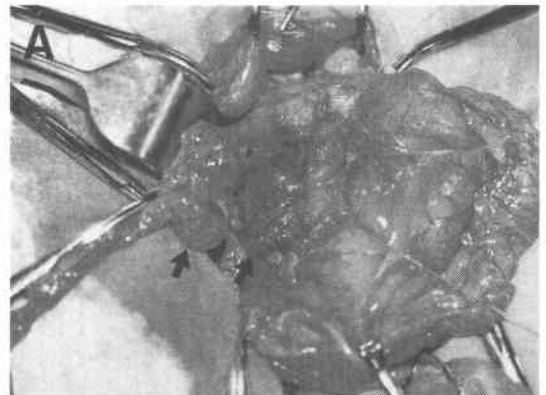
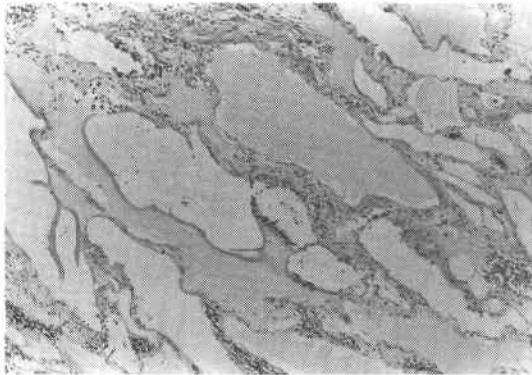


Fig. 5 Histopathological findings of the tumor (H.E. $\times 80$). Note the marked dilatation of the lymphatic duct with lymphocytic infiltration.



は後方に伸展し、網嚢内を占拠していた (Fig. 4A)。また網嚢内の嚢胞壁は胃角部と接し、肝左葉下面、膵前面と癒合していた。手術操作としては、胆嚢摘出後胃角部より食道胃接合部まで胃壁小彎に沿って小網を切離し、ついで嚢腫の剝離を膵前面、脾門部、肝左葉下面の順に進め、小網とともに多房性嚢胞を一塊として切除した。その際、左胃動静脈はおのおの、根部で切離した。また嚢腫摘出に伴う迷走神経切離に対して Heineke-Mikulicz 型幽門形成術を付加した。

摘出標本：嚢腫は12.0 \times 5.0 \times 3.4cm, 150g, 暗赤色多房性で薄い被膜を有し、内容液は淡褐色透明であった (Fig. 4B)。

病理組織学的所見：嚢腫の被膜には静脈、およびリンパ管の著明な拡張、増生および、間質にリンパ球の高度な浸潤を認め、小網原発のリンパ管腫と診断した (Fig. 5)。

術後経過：術後胃内容の停滞による軽度の嘔気を認めたが除々に軽快し、術後28日目に退院した。

III. 考 察

従来より原発性小網腫瘍の報告例は少なく、著者らの集計では1993年2月の時点で本邦では86例が報告されているにすぎない^{1)~10)}。成因はリンパ管腫が最も多く自験例を含めると26例 (30.2%) を占めるが、嚢腫の形態を呈した例に限るとこれら26例以外にも、炎症性嚢腫、血管腫、皮様嚢腫、原発性嚢腫が合計10例報告されている (Table 2)。一方、原発性大網腫瘍は、八上ら¹¹⁾の集計によると1972年の時点で104例が集計されており小網に比べ多数の報告例がみられている。その成因としてリンパ管腫は全体の50%に達し、小網

Table 2 Etiology of lesser omental tumor in Japan (1927~Feb. 1993)

Etiology	No. of cases
Pseudo tumor	
1) Acute inflammation	1
2) Tuberculoma	1
3) Inflammatory cyst	4
True tumor	
1) Leiomyogenic tumor	
Leiomyoma	8
Leiomyosarcoma	15
Malignant myoblastoma	2
2) Connective tissue origin	
Fibroma	2
Fibrosarcoma	1
3) Angiogenic tumor	
Angioma	3
4) Lymphatic tissue origin	
Lymphangioma	27
5) Neurogenic tumor	
Schwannoma	14
Neurofibroma	1
6) Embryonic tumor	
Dermoid cyst	1
7) Others	
Primary cyst	2
Rhabdomyosarcoma	1
Liposarcoma	1
Spindle cell sarcoma	2
Heterotopic pancreas	1
Total	87

の場合とほぼ同様の傾向となっている。

リンパ管腫はリンパ管原発の良性腫瘍で、主として小児の頸部、胸部に発生し、腹腔内臓器より発生するものは比較的少なく¹²⁾、とくに小網原発例はまれで腹腔内発生例のうちわずかに1.7%を占めるにすぎない²⁾。組織学的には、1) 毛細管性、2) 海綿状、3) 嚢胞性、4) 混合性の4種類に分類されている¹²⁾が、本邦における小網原発のリンパ管腫はいずれも嚢胞を有していた。とくに、本邦例では自験例の如く多房性が85%と多数を占めていた。成因としては、1) 先天的リンパ管閉塞、2) 迷入リンパ組織の自律的増殖、3) 機械的リンパ管閉塞などがあげられているが明確な結論は得られていない³⁾。

リンパ管腫は大部分が幼少期に発症する¹²⁾が著者らの集計^{1)~8)}では小網原発例に限ると1歳から74歳 (平均40 \pm 23歳) と幅広い年齢分布を示した。また男女比

Table 3 Major clinical findings of lymphangioma of the lesser omentum

	No. of Cases*	(%*)
Symptoms		
Nausea, Vomiting	11	(42)
Abdominal pain	10	(38)
Abdominal fullness	10	(38)
Distention	4	(15)
Fever up	3	(12)
Back pain	1	(4)
Signs		
Palpable tumor	8	(31)
Mobile tumor	5	(19)
Tenderness	5	(19)
Défence musculaire	2	(8)
Tumor fluctuation	2	(8)

*Including overlapped cases

も、男性14人、女性12人と性差は認められなかった。本症の臨床症状として悪心、嘔吐が11例に認められ、次に腹痛、腹部膨満感の順に発現頻度が高い (Table 3)。このように、症状に特異的なものはなく、臨床症状から本症を疑うことは一般的には困難と考えられた。一方、身体所見では、腫瘤触知、腫瘤の移動、同部の圧痛などが報告されている。とくに腫瘤の移動は floating sign と呼ばれ、本症に特徴的な所見としてあげられている¹⁾。また中には巨大化し、茎捻転や囊腫内出血などの合併症を来し、致命的となった例が3例報告されており経過観察の際には注意が必要と思われた。

診断について、腹部 CT, MRI, 超音波検査では、いずれも嚢胞状パターンを示す例がほとんどで、これらの諸検査は質的診断に有用²⁾と考えられる。また上部消化管造影においては胃小彎側への圧排所見を、腹部血管造影では左右胃動脈、左肝動脈などの圧排、伸展像を認める例が多く、腫瘍の占居部位の同定に有用³⁾と考えられる。自験例を含め嚢胞液の採取は4例に施行され、全例ともリンパ球に富む血清に類似した所見が報告されており、脾嚢胞などほかの嚢胞性疾患との鑑別上有用と思われた。しかし術前に確定診断を得るのは困難で、26例中術前に本症と診断されたものは1例にすぎない (Table 4)。その原因として、1) 小網は肝、脾、胃に近接していること、2) 小網が面積、体積ともに小さいこと、3) 臨床症状、身体所見に特異的なものがないこと、および、4) 小網リンパ管腫自体がまれで一般に認識が低いことなどが考えられる。

Table 4 Preoperative diagnosis of lymphangioma of the lesser omentum in Japan

Preoperative diagnosis	No. of Cases
Intraperitoneal tumor(cyst)	4
Lesser omental tumor(cyst)	4
Pancreatic cyst	3
Mesenteric tumor(cyst)	3
Extra-stomach tumor	2
Acute appendicitis	1
Liver cyst	1
Ovarian cyst	1
Torsion of the ovarian cyst	1
Cyst in bursa omentalis	1
Lymphangioma of the lesser omentum	1
Undetermined	4
Total	26

小網リンパ管腫の治療に関しては、本症は前述のように、重篤な合併症を引き起こすことがあり、増大傾向を示すもの、症状が強い場合、あるいは鑑別診断が困難な場合は手術適応と考えられる。しかし予後は良好で、切除後の再発、悪性化の報告はない。術式は、遺残嚢腫よりの再発、リンパ漏などの後遺症を防止するうえで、開窓術、部分切除などでなく、完全な嚢腫摘出もしくは小網全切除術が必要と考えられる。その際、迷走神経の損傷に対しては、適宜、幽門形成術の追加が必要と考えられた。

文 献

- 1) 今井利賢, 長岡淳一, 椎名弘忠: 小網嚢腫茎捻転の1例。本邦網膜嚢腫報告例の統計的観察。外科 35: 575-579, 1973
- 2) 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。日消外会誌 84: 1325-1330, 1987
- 3) 稲葉征四郎, 近藤雄二, 久保速三ほか: 小網に発生したリンパ管嚢腫の1例。日臨外医会誌 49: 1267-1271, 1988
- 4) 小林浩司, 芳賀駿介, 熊沢健一ほか: 成人女性にみられた小網嚢腫の1例。東京女医大誌 59: 879-883, 1989
- 5) 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
- 6) 伊藤研一, 久米田茂喜, 岩浅武彦ほか: 小網リンパ管腫の1例。日消外会誌 25: 2818-2822, 1992
- 7) 江本 節, 高尾哲人, 中島信一ほか: 縦隔異常陰影で発見された小網嚢胞の1例。日臨外医会誌 53: 3027-3032, 1992
- 8) 川島吉之, 須田雅夫, 関根 毅ほか: 原発性小網腫

- 瘍の2例。埼玉県医学会誌 26:791-796, 1992
- 9) 田村保明, 小野寺秀, 谷口由輝ほか: 小網原発神経鞘腫の1例。腹部画像診断 9:769-774, 1989
- 10) 松谷泰雄, 向原純雄, 胡 興柏ほか: 小網より発生したと思われる平滑筋芽細胞腫 (Leiomyoblastoma) の1例。京都市病紀 10:42-46, 1990
- 11) 八上 彪, 大住寛二, 染谷 隆ほか: 原発性大網腫瘍の1例。外科 35:1154-1156, 1972
- 12) 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。現代外科学体系, 第18巻。末梢神経・リンパ系の外科。中山書店, 東京, 1973, p323-363

A Case of Lymphangioma of the Lesser Omentum

Masafumi Shiotani, Yonson Ku and Yoshi Nagahata
 First Department of Surgery, Kobe University School of Medicine
 (Professor: Yoichi Saitoh)

We experienced a case of lymphangioma of the lesser omentum. The patient was a 56-year-old woman who visited the hospital with a complaint of upper abdominal discomfort. Based on the preoperative diagnosis of cyst in the bursa omentalis obtained by imaging techniques including abdominal ultrasonography, CT and MRI, surgery was performed. since a multilocular tumor was found mainly in the lesser omentum, we considered the tumor was of lesser omentum origin. The tumor was 12.0 × 5.0 × 3.4 cm in size, 150 g in weight, and had a smooth, dark red surface. Histopathological examination confirmed a diagnosis of lymphangioma. Lymphangioma of the lesser omentum is a relatively rare disease, and to date only 25 cases have been reported, in the Japanese literature, excluding the present case. In this paper, we reviewed the reported cases of lymphangioma of the lesser omentum in Japan, with special reference to the diagnostic and therapeutic aspects.

Reprint requests: Yonson Ku First Department of Surgery, Kobe University School of Medicine
 7-5-2 Kusunoki-cho, Chuo-ku, Kobe, 650 JAPAN