# イレウス症状を呈した腸間膜乳び嚢腫の1小児例

藤田保健衛生大学医学部消化器外科 社会保険埼玉中央病院外科<sup>1)</sup> 同 小児科<sup>2)</sup>,同 病理<sup>3)</sup>

前田耕太郎 森 泰二郎<sup>2)</sup> 橋本 光正<sup>1)</sup> 田島 厳吾<sup>1)</sup> 石川 秀樹<sup>1)</sup> 白石 天三<sup>1)</sup> 中島顕一郎<sup>1)</sup> 洪 淳一<sup>1)</sup>

山本 修美1) 細田洋一郎1) 堀部 良宗3)

イレウス症状にて発症し、超音波ガイド下穿刺でイレウス症状を改善し、穿刺液より腸間膜乳び嚢腫を疑い、待機手術を施行した腸間膜乳び嚢腫の1例を報告する。症例は9歳の男性で、嘔吐にて発症した。腹部単純 X 線検査では拡張した小腸ガスと鏡面像がみられ、超音波検査では膀胱に接して頭側に約10cm 大の多房性の嚢胞状の腫瘤を認めた。腫瘤に関連したイレウスと考え超音波ガイド下穿刺を行い、乳び液200ml を吸引した。翌日イレウス症状は改善したが、排液は持続したため腸間膜乳び嚢腫の診断で待機手術を施行した。開腹すると、空腸腸間膜に空腸に接して約8cm 大の暗赤色の嚢胞状の腫瘤を認めた。腸間膜を含め空腸を11cm 切除し吻合した。腫瘍は7.5×6cm 大で病理組織所見はリンパ管腫であった。小児の原発性イレウスでの、超音波検査の重要性と超音波ガイド下穿刺の有用性を呈示する症例と考え報告した。

**Key words:** mesenteric cylous cyst, primary ileus in the childhood, ultrasonographic drainage for mesenteric cyst

#### L はじめに

腸間膜嚢腫は、比較的まれな疾患であるが、そのなかでも腸間膜乳び嚢腫はきわめてまれであり、検索しえた範囲でも、本邦ではこれまで文献上39例の報告"があるに過ぎない。腸間膜嚢腫は、従来術前診断されることが少なかったが1121、近年画像診断の進歩により術前診断されるようになってきた31~51。しかしながら内容液までの診断が可能であった症例の報告4151は少ない。われわれは、イレウス症状にて発症した症例に対し、腹部超音波検査と超音波ガイド下穿刺を行うことで緊急手術を回避し、採取した穿刺液の性状と生化学所見より腸間膜乳び嚢腫を疑い、全身状態を改善した後、待機手術を施行した症例を経験したので報告する。穿刺後の穿刺液の性状と生化学所見の変化が、腸間膜乳び嚢腫の成因を考慮するうえで興味深いを考えられたので同時に報告する。

II. 症 例

患者: 9歳, 男性

<1995年10月11日受理>別刷請求先:前田耕太郎 〒470-11 豊明市沓掛町田楽ケ窪1-98 藤田保健衛 生大学医学部消化器外科 主訴:嘔吐

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:1995年1月20日より嘔吐がみられた。1月24日近医受診,胃腸炎の診断のもとに加療していたが,嘔吐が改善せず,1月23日より腹痛も出現したため,1月24日当院小児科に紹介され,精査加療目的で同日入院となった。この間、4kgの体重減少を認めた。

入院後現症:体格中等度で貧血黄疸はなく,表在リンパ節の腫大も認めなかった。体温は37.1°Cで,血圧は126/80mmHg,脈拍106整であった。胸部には異常は認めなかったが,皮膚は乾燥していた。腹部は臍周囲を中心に中等度膨満していたが,圧痛はなく,腹鳴は軽度減弱していた。腹満のため腫瘤はあきらかでなかった。

入院時検査所見:末梢血,血液生化学では,白血球数が10,300/mm³以外は特に異常はみられなかった。C 反応蛋白 (CRP) は0.08mg/dl と正常値であり,検尿でケトン体が3+以外は特に異常所見はみられなかった。

腹部単純 X 線検査所見: 仰臥位の腹部単純 X 線で

は拡張した小腸ガスを主に上腹部中心に認め、大腸のガス像はほとんど認めなかった。立位では鏡面像も認めた

入院後経過:浣腸を施行したがほとんど反応便はなく,禁飲食と点滴で翌日まで経過観察した。翌日の腹部単純 X 線検査でも,イレウス像に改善が認められなかったため、同日胃管を挿入した。

注腸造影検査所見:回腸末端まで良好に造影され、 同部までの閉塞像は明らかでなかったが、S 状結腸の 内側よりの圧排検所見が認められた。

腹部超音波検査所見:膀胱の頭側に接して,正中に 臍部までにおよぶ約10cm 大の多房性の囊胞状病変を 認めた。嚢胞内部はほぼ均一な低エコー像で,嚢胞内 には小石灰化も散在していた(Fig. 1)。

腹部 computed tomography (以下, CT)検査所見: 注腸造影検査による残存バリウムのため十分な検索は できなかったが,腹部正中に臍部より骨盤内におよぶ 約8cm 大の囊胞状病変を認めた。嚢胞内には小石灰化 も認められた。

上記所見より,腸間膜嚢腫もしくは尿膜管嚢腫に関連したイレウスと考え,超音波ガイド下に 7 フレンチのピッグテイルカテーテルを用いて嚢腫の穿刺を行った。穿刺液は黄白色乳び様,無臭で約200ml 吸引され,穿刺後の腹部超音波検査では嚢腫は消失していた。 カテーテルよりの造影検査では,小骨盤腔内に約9cm 大の嚢胞状病変が造影された。

穿刺液所見:生化学検査では、総蛋白 (T.P.) 4.9g/dl, アルブミン (Alb) 4.0g/dl, 総コレステロール (T-chol) 172mg/dl, 中性脂肪3,147mg/dl, リン脂質344mg/dl と中性脂肪,リン脂質が高値を示した。細胞診では、沈渣はすべてリンパ球であり、悪性所見はみられなかった。穿刺液にエーテルを混入すると穿刺液は透明に変化し、穿刺液は乳び液であると診断された  $(Fig.\ 2)$ .

穿刺後経過:穿刺翌日にはイレウス症状は改善し,腹部単純 X 線検査でも小腸ガスはほぼ消失していたため,経口摂取を開始した。穿刺液は穿刺翌日には漿液性へと変化し(Fig. 2),穿刺液の生化学検査では,T-chol は91mg/dl,中性脂肪は56mg/dlへと減少していた.排液量は穿刺後6日目までは1日100~170mlであった。その後2日間は10~20mlに減少したが,以降は再度1日50~200mlの排液量となり再び乳白色となった。この間,腸間膜乳び嚢腫を疑い小腸造影検査と腹部CT検査を施行したが,小腸造影検査では明ら

**Fig. 1** Abdominal echogram demonstrated a multilobular cystic lesion 10cm in diameter cranial to the cystic bladder.

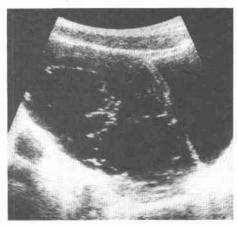
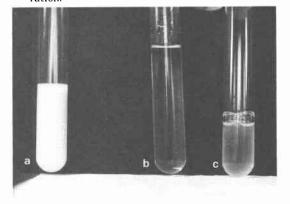


Fig. 2 Chyrous fluid (a) was drainaged from the catheter at first. Chyrous fluid changed to the transparent fluid (b) by adding the ether. Serous fluid (c) was drainaged the follwing day of aspiration.



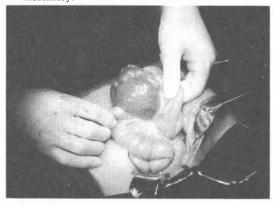
かな異常は指摘できなかった.

腹部 CT 検査所見:小骨盤腔内のドレナージチューブ周囲に、約5cm 大の嚢胞状病変を認めた。嚢胞内容の CT 値は水に近く、嚢胞内には小石灰化も認められた。

排液が減少しなかったため、腸間膜乳び嚢腫の診断で穿刺後19日目に手術を予定したが、感冒による発熱のため延期し、穿刺後28日目に手術を行った。

手術所見:腹腔内には腹水はなく、小腸の腸間膜に ある約8cm 大の暗赤色の嚢腫が、小腸とともに小骨盤 腔内に存在していた、嚢腫と骨盤内の臓器との癒着は

Fig. 3 A dark red cystic mass 8 cm in diamater was observed in the mesentery of the jejunum. Cystic mass had an adhesion to the adjacent mesentery.



**Fig. 4** Microscopic finding showed a dilated lymph vessel hyperplasia composed of one layer of flat endothelium besides the intestinal wall (H-E stain, ×5). Histopathological diagnosis was lymphangioma.



なく小腸は容易に挙上できた.囊腫はトライツ靱帯より回盲弁の間の,小腸の中間よりやや肛門側の空腸腸間膜に存在していた(Fig. 3). 囊腫は周囲腸間膜と軽度癒着していたが,小腸壁側は癒着が高度であったた

め、腸間膜を含めて空腸部分切除術を施行した

切除標本所見:空腸は11cm 切除されており、囊腫は7.5×6.0cm 大の類円形で、内容は旧血様であった。

病理組織学的所見:一層の扁平な内皮細胞を有する リンパ管増生がびまん性にみられ、管腔は拡張していた。リンパ球の集蔟像も認められた。壁は比較的肥厚 しており平滑筋の増生を伴っていた。一部では壁は石 灰化していた。小腸漿膜と囊腫壁間には、高度の炎症 所見がみられ、嚢腫内腔には血液を有していた。病理 組織学的にリンパ管腫と診断された(Fig. 4)。

術後経過:術後経過は順調で、術後13日目に退院した。

### III. 考察

腸間膜嚢腫は比較的まれな疾患であるが,近年画像診断の進歩により,より多く報告されるようになってきた $^{305}$ . そのなかでも腸間膜乳び嚢腫はきわめてまれであり,腸間膜嚢腫の約12% を占め,検索しえた範囲でも,本邦ではこれまで39例の報告 $^{11}$ があるに過ぎない。

陽間膜乳び嚢腫の好発年齢は、49%が9歳以下で、69%が15歳以下と小児に多いと報告いされており、自験例も9歳と好発年齢であった。近年では成人例の報告い3>~5/7>9)が多くなっているようである。男女比は1.85:1と男性に多い傾向かにある。

腸間膜乳び囊腫の成因としてはこれまで胎児期発生説,迷入リンパ組織説,機械的閉塞説,外傷説などがあるが、定説はない<sup>12)8)</sup>. 小児例では遺残した原始リンパ嚢から発生した先天的なものと考えられる例が多く<sup>8)</sup>, これが腸間膜のリンパ流と交通し, 小腸とくに脂質の吸収の盛んな空腸より吸収した脂質により, 乳びが貯留したと考えられている<sup>2)</sup>. このため腸間膜嚢腫の発生部位が小腸でも回腸に多いのに対し, 腸間膜乳び囊腫の発生部位は空腸に多い(空腸54%, 回腸15%<sup>1)</sup> と説明<sup>2)</sup>されている。自験例でも, 空腸に発生し, 穿刺液は乳びであったが, 穿刺後禁食により穿刺翌日には漿液性へと変化し, 食事再開後再び乳びに変化したことは, この説を裏付けるものと考えられた. さらに穿刺液の生化学検査での, 中性脂肪の減少もこのことを裏付けるものと考えられた.

症状としては腹痛,腫瘤触知,吐気,嘔吐,腹部膨 満感の順に多いと報告<sup>1011)</sup>されているが,無症状で発 見されることもある<sup>4)</sup>. 合併症も約25~49%にみられ, イレウス,嚢胞内出血,茎捻転などが報告<sup>12)</sup>されてい る.

診断には腹部超音波検査が有用であり4)10)13), 多房性 のほぼ均一な低エコーレベルの壁の薄い嚢胞性腫瘤が 特徴的な所見で、小石灰化が認められることがある。 卵巣囊腫と誤診した症例の報告70140150もあり、腹部 CT 検査を併用して腸管との位置関係を確認することで腸 間膜嚢腫としての診断がより確実となる場合が多 い3)~5)8)10)16) 到び嚢腫としての診断には、超音波ガイ ド下穿刺が有用4)5)であり、穿刺液の無臭、無菌、乳び 様所見5,生化学検査での中性脂肪3)4)、リン脂質の高 値4, エーテル添加による乳び様所見の消失5)が乳びの 診断に有用と考えられる、自験例においても超音波ガ イド下穿刺によって得られた穿刺液のエーテル添加に よる変化。生化学検査所見により乳びが確認でき腸間 膜乳び嚢腫と診断しえた、腹部 CT 検査では、嚢胞内 容の脂肪濃度液体と水濃度液体による fluidfluid level の形成で乳び内容を診断できるとの報告16)~18)もある が、自験例では明らかでなかった。magnetic resonance image 検査により、囊胞内性状の診断が可能で あるとの報告19)もある。腹部単純 X 線検査での嚢腫部 位の石灰化が補助診断として有用であるとの報告がも あるが、自験例では腹部超音波検査、腹部 CT 検査で 石灰化陰影を確認しえたものの、腹部単純 X 線検査で は明らかでなかった.

治療としては、囊胞内容を開腹"もしくは超音波ガ イド下で穿刺りした例が報告されているが、穿刺吸引 のみでは再発をきたしており、切除が必要と考えられ る。自験例でも穿刺後排液が持続したため手術を行っ た. 小児例では急性腹症としての発症が多く, 緊急開 腹される場合が多い8)。自験例では超音波ガイド下穿 刺排液を行うことによりイレウス症状を解除し緊急手 術を回避しえた。イレウスなどの合併症を有する症例 では、自験例のごとく全身状態を改善した後予後手術 を行うことで、より安全に手術を行うことができると 考えられ, 術前の超音波ガイド下穿刺排液の有用性が 示唆された。手術としては、囊腫のみを摘出し腸管切 除は避けるべきであるという報告20)もあるが、腸管と の剝離困難な症例も多く、腸間膜乳び嚢腫の70%以上 の症例2)8)に腸管の合併切除がなされている。自験例で も、組織学的に小腸漿膜と囊腫壁間に高度の炎症所見 がみられており、腸管切除が適切であったと考えられ た. 囊腫の摘出のために小腸の大量切除が必要な症例 では、造窓術も有用とする報告2)21)や、完全切除が不可 能な症例で、20%糖液を嚢腫内に注入し治癒した報 告22)もある.

予後は良好とされているが,再発例の報告<sup>23)</sup>もあり, 術後の経過観察が必要であると考えられる.

#### 文 献

- 1) 塩見尚礼,谷 徹,鈴木雅之ほか:巨大な腸間膜 乳び嚢腫の1例.日臨外医会誌 55:1575-1579,
- 塚田 博,高橋正彦,田中秀行ほか:小児腸間膜乳 び嚢腫の1例。小児外科 23:79-82, 1991
- 3) 池口正英, 西土井英昭, 工藤浩史ほか:成人腸管膜 乳び嚢腫の1例. 外科 54:888-890, 1992
- 4) 小島康知,有田道典,先本秀人ほか:術前診断しえた腸間膜乳び腫の1例。広島医 44:708-711, 1991
- 5) 奥芝俊一,藤田美芳,高橋基夫ほか:陽間膜乳び腫 の1例,北海道外科誌 30:63-67,1985
- 6) 岩川真由美,高橋英世,大沼直躬ほか:腸間膜乳ビ腫の3例,日小児外会誌 19:729-734,1983
- 7) 宮本幸男,中村正治,渡辺 徹ほか:腸間膜乳び腫 の1治験例。消外 15:247-250, 1992
- 8) 高木 格, 丹羽 傳, 谷脇 総:成人の陽間膜乳び 嚢腫の1例, 外科 55:1144-1148, 1993
- 9) 富沢直樹,田中 純,鯉渕幸生ほか:腸間膜嚢胞成 人型の2症例と本邦報告例の検討,北関東医 41:867-878,1991
- 10) 黒岩 実, 松山四郎, 鈴木則夫ほか: 術前診断し得た腸間膜嚢腫の2例-本邦報告例の集計と超音波検査の有用性について。日小児外会誌 24:1122 -1131, 1988
- 11) Latif al-Arfaj A, al-Kreedees A: Mesenteric chylous cyst. Case report. Eur J Surg **157**: 557—558, 1991
- 12) 可児淳郎,岸川輝彰,伊藤 寶ほか:嚢腫内出血を 呈した小児腸管膜嚢腫の1例.日小児外会誌 16:1247-1251,1980
- 13) Stuart RP, Leonard FB, Madhavan TV et al:
  Mesenteric chylous cyst associated with Crohn's disease. Am J Gastroenterol 82: 798-801,
  1987
- 14) 木山輝郎, 恩田昌彦, 水谷 崇ほか:卵巣皮様嚢腫 を疑われた小腸および小腸腸間膜リンパ管腫の 1 例. 日消外会誌 23:1921—1923, 1990
- 15) Chin SH, Gill JS: A large chylous cyst of the mesentery simulating an ovarian cyst: A case report. Asia Oceania J Obstet Gynaecol 13: 273 —276, 1987
- 16) 中村仁信, 橋本 勉, 永岡浩人ほか:腸間膜乳び嚢腫の画像診断. リンパ学 9:157-158, 1986
- 17) Rifkin MD, Kurtz AB, Pasto ME: Mesenteric chylous lymph-containing cyst. Gastrointest Radiol 8: 267—269, 1983
- 18) Phillips GW, Sanapati A, Young AE: Chylo-

lymphatic mesenteric cyst: a diagnostic appearance on computed tomography. Br J Radiol 61:413—414, 1988

- 19) 金井塚敏弘, 伊藤賢次, 繁田浩史ほか: 後腹膜巨大 リンパ管腫に血管腫を合併した 1 症例。日内会誌 76:1595-1603、1987
- 20) Armando S, Kiran JP, John AS et al: Mesenteric cysts. Am Surg 58: 58-60, 1987
- 21) Burnett WE, Rosemond GP, Bucher RM:

Mesenteric cysts; Report of three cases, in one with a calcified cyst was present. Arch Surg 60: 699-706, 1950

- 22) 上原力也,川畑 勉,山内和雄ほか:急性腹症を呈した巨大腸間膜嚢腫の1例。沖縄医会誌 10:61 -63、1989
- 23) Waler AR, Putnum TC: Omental, mesenteric and retroperitoneal cysts: A clinical study of 33 new cases. Ann Surg 178: 13—19, 1973

## Obstructive Ileus due to a Mesenteric Chylous Cyst in a Pediatric Patient —Report of a Case—

Koutarou Maeda, Taijirou Mori<sup>2)</sup>, Mitsumasa Hashimoto<sup>1)</sup>, Gengo Taijma<sup>1)</sup>, Hideki Ishikawa<sup>1)</sup>,
Tenzo Shiraishi<sup>1)</sup>, Kenichirou Nakajima<sup>1)</sup>, Junichi Koh<sup>1)</sup>,
Osami Yamamoto<sup>1)</sup>, Youichrou Hosoda<sup>1)</sup> and Yoshimune Horibe<sup>3)</sup>
Department of Surgery, Fujita Health University School of Medicine
Department of Surgery<sup>1)</sup>, Pediatrics<sup>2)</sup> and Pathology<sup>3)</sup>, Social Insurance
Saitama Chuo Hospital

A 9-year-old boy was admitted to our hospital due to vomiting for 4 days. He had no history of operation. A plain X-ray film demonstrated dilated intestinal gas. Ultrasonography showed a cystic mass  $10\,\mathrm{cm}$  in diameter cranial to the cystic bladder. Drainage of the cystic mass using ultrasonography was performed because the cystic mass was considered to be the origin of obstructive ileus. Chylous fluid (200 ml) was drainaged, and ileus disappeared the following day. Mesenteric chylous cyst was suspected by CT scanning as well. Elective surgery for mesenteric chylous cyst was performed due to persistent drainage of fluid, although ielus did not occur again after the drainage procedure. Laparotomy showed a dark red mesenteric cyst of the jejunum  $8\,\mathrm{cm}$  in diameter. Partial resection of the jejunum was performed. The size of the cyst was  $7.5\times6\,\mathrm{cm}$  in diameter, and histological study showed lymphangioma of the mesentery. This case is considered to show the usefulness of ultrasonography and ultrasonographic drainage for primary ileus in childhood.

**Reprint requests:** Koutarou Maeda Department of Surgery, Fujita Health University School of Medicine

1-98 Dengakugakubo, Kutsukake, Toyoake, 470-11 JAPAN