

症例報告

腸重積で発症した回腸リンパ管腫の1例

北里大学医学部外科

小野里 航 中村 隆俊 旗手 和彦 小澤 平太
佐藤 武郎 國場 幸均 井原 厚 渡邊 昌彦

症例は55歳の女性で、昼食後より腹痛、嘔吐が出現し近医を受診した。近医では腸閉塞と診断され、入院後イレウス管を挿入され保存的治療をうけた。その後も症状改善せず、発症5日後より腹痛増強のため当院転院となった。入院時腹部全体に強い圧痛と反跳痛を認め、右下腹部には手拳大の腫瘤を触知した。腹部造影CTでは回盲部にtarget signを認めた。腸重積による腹膜炎と診断し、緊急手術を施行した。術中所見では回腸一回腸一結腸型の腸重積を認め、回盲部は巨大ソーセージ様の暗赤色腫瘤を形成していた。用手整復が困難であったので回盲部切除術を施行した。切除標本で回腸末端から54cmの部位に2.7cm大の粘膜下腫瘍を認め、この粘膜下腫瘍が先進部位となっていた。また、回腸末端から20cmの部位にはメッケル憩室を認めた。病理組織学的検査では回腸リンパ管腫と診断された。小腸リンパ管腫はまれであり、本邦では36例の報告があるが、しかし腸重積で発症した報告例は6例と少なく、本症は極めてまれな症例と考えられた。成人腸重積の原因の一つとして、小腸リンパ管腫を念頭におく必要があると考えられた。

はじめに

成人腸重積症はまれな疾患であり、その大部分は腸管の器質的疾患が原因である。とくに大腸癌によるものが最も多く、小腸では悪性リンパ腫や脂肪腫によるものが多い。小腸リンパ管腫は小腸の良性腫瘍の1~2%とまれな疾患であり、本邦では36例の報告がある。なかでも腸重積で発症した小腸リンパ管腫は6例と極めてまれであった。今回、我々は回腸のリンパ管腫が原因で、腸重積症を発症した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：55歳、女性

主訴：腹痛、嘔吐

既往歴：35歳時卵巣嚢腫で嚢腫核出術。

家族歴：特記すべきことなし。

生活歴：喫煙歴なし。飲酒歴なし。

現病歴：昼食後より腹痛、嘔吐を認め、近医を受診した。腹部単純X線検査で鏡面像を認めたため、腸閉塞の診断で入院となった。イレウス管挿入にて保存的治療が行われたが症状は改善せず、発症後5日目に、腹痛が増強し腹膜炎の所見が出現したため当院転院となった。

入院時現症：血圧134/72mmHg、脈拍100回/分、体温40.0℃。眼球結膜貧血・黄疸なく、胸部異常所見なし。右下腹部に手拳大の腫瘤を触知し、同部位に著明な圧痛を認め、腹部全体に反跳痛を認めた。

入院時検査所見：血液検査では、白血球数は2,200/mm³と低下し、CRPは10.3mg/dlと著明な上昇を認め、敗血症が疑われた。その他、生化学検査では異常所見はなく、腫瘍マーカーも正常範囲内であった (Table 1)。

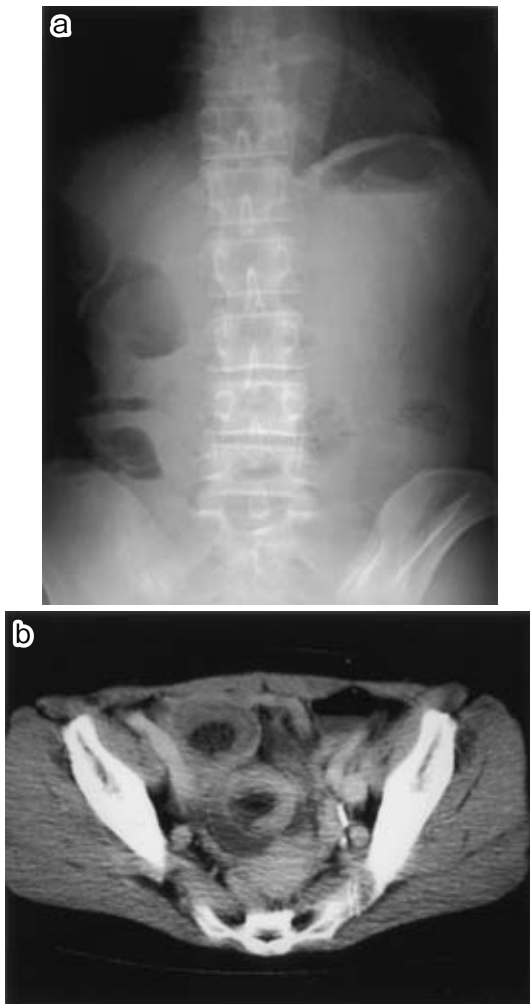
腹部単純X線検査：立位で右上腹部を中心に鏡面像を認めた (Fig. 1a)。

腹部造影CT：右下腹部にtarget signを認めた。小腸は一部拡張し、肝表面とダグラス窩に腹

Table 1 Laboratory findings upon admittance

WBC	2,200 /mm ³	TP	6.1 g/dl	BUN	9 mg/dl
RBC	442 × 10 ⁴ /mm ³	Alb	3.0 g/dl	Cr	0.38 mg/dl
Hb	14.2 g/dl	TB	0.5 mg/dl	Na	137 mEq/L
Ht	41.7 %	GOT	21 IU/L	K	3.2 mEq/L
Plt	24.6 × 10 ⁴ /mm ³	GPT	12 IU/L	Cl	97 mEq/L
		ALP	201 IU/L	Glu	140 mg/dl
CEA	0.6 ng/ml	LDH	205 IU/L	CRP	10.3 mg/dl
CA19-9	4 U/ml	CPK	174 IU/L		

Fig. 1 a : Plain abdominal X-ray.
b : Enhanced CT.



水を認めた(Fig. 1b). 腸重積に伴う腹膜炎と診断し、緊急手術を施行した。

手術所見：腹腔内には膿性の腹水を中等量認め

た。盲腸および上行結腸は暗赤色で硬く著明に拡張していた。回盲部から20cmの部位で約30cmの回腸の重積陥入を認め、先進部は上行結腸肝彎曲部に達していた。重積部でメッケル憩室が絞扼され壊死していた。腸重積の用手整復は困難であったため、回盲部切除術を施行した(Fig. 2a)。

摘出標本肉眼検査所見：回盲弁から26cm口側の回腸に3.5×3cm大のメッケル憩室を認め、そこから口側23cmにわたる回腸が壊死していた(Fig. 2b)。さらに、口側7cmの部位に2.7×1.8cm大の粘膜下腫瘍を認めた(Fig. 2c)。

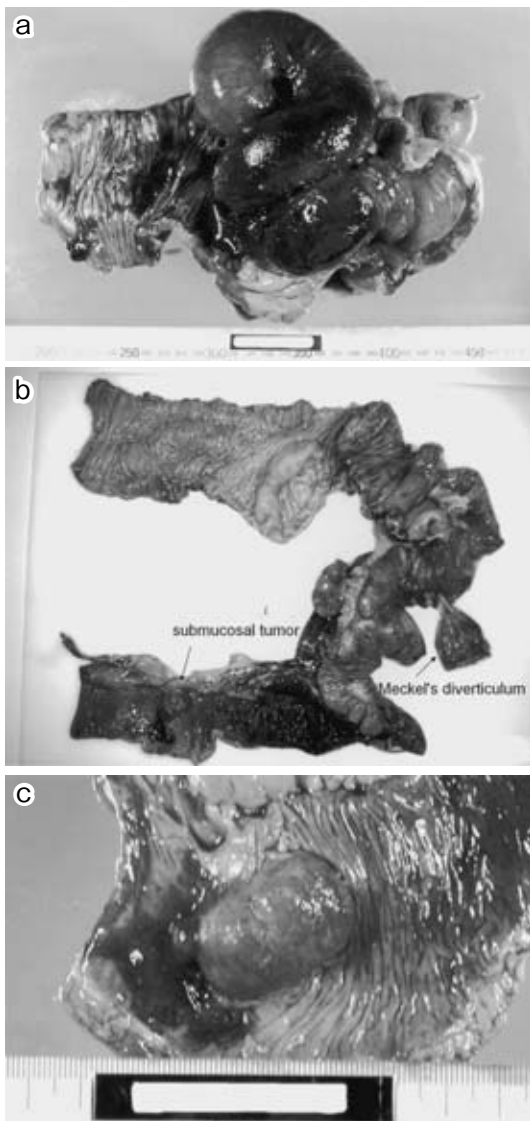
病理組織学的検査所見：ルーペ像では粘膜と筋層の間に拡張したリンパ管像を認めた(Fig. 3a)。拡大像では一層の内皮上皮で形成されたリンパ管の拡張像を認め、内部にはリンパ液の貯留を認めた(Fig. 3b)。以上より、回腸海綿状リンパ管腫と診断した。術後経過は良好で術後18日目に退院した。

考 察

リンパ管腫は非上皮性の良性腫瘍で、小児に多い。その発生部位は頸部、頬部、舌、舌下部が過半数を占め¹⁾、消化管に発生することは比較的まれで、リンパ管腫全体の0.1%以下である²⁾。さらに、小腸に発生することは少なく、Good³⁾は659例の小腸腫瘍のうち16例(2.4%)がリンパ管腫であったと報告している。本邦では八尾ら⁴⁾の報告では214例の空・回腸の良性腫瘍のうち、3例(1.4%)がリンパ管腫であった。当院における過去18年間の小腸腫瘍切除例は60例であったが、リンパ管腫は初例であった。本邦における「空・回腸リンパ管腫」をキーワードとする報告は医学中央雑誌、Medline(1967~2005年)の検索では、本症例を含

Fig. 2 Excised specimen.

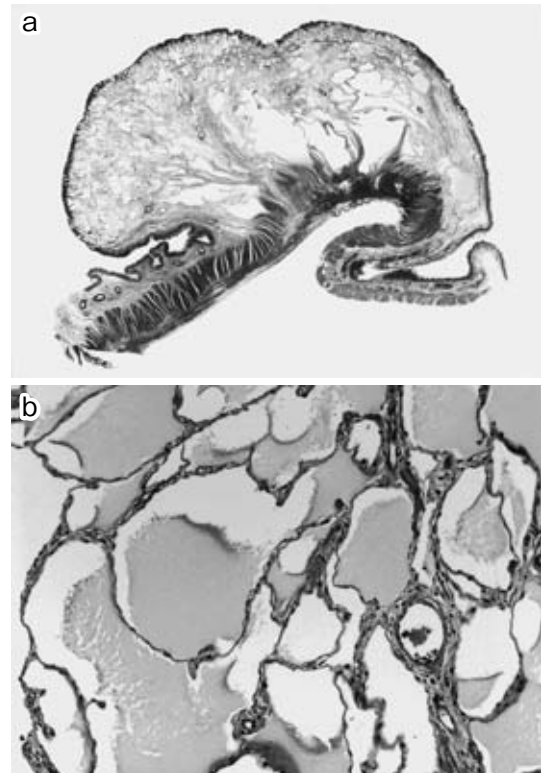
- a : Invagination of the ileum of about 30 cm was noted 20 cm from the ileocecum.
- b : The resected specimen was a submucosal tumor long located 54 cm from the distal ileum. Meckel's diverticulum was noted 20 cm from the distal ileum.
- c : A submucosal tumor 2.7 × 1.8 cm in size was noted at the opening of the ileum 33 cm from the ileocecal valve.



め36例であった^{5)~14)}。本邦報告例の臨床的背景をまとめると年齢は平均42.1歳(0歳~72歳)で、男女比は19:17でほぼ同等であった。主訴は主として消化器症状で、腹痛が20例(55.6%)、消化管

Fig. 3 Histopathology.

- a : In ordinary [microscopic] images, enlarged lymph ducts were noted between the mucosa and muscular layers (H.E. stain).
- b : In magnified images, enlargement of lymph ducts formed by a layer of endothelium and epithelium was noted : accumulation of lymph was noted inside (H.E. stain, ×100).



出血は6例(16.7%)、便通異常が2例(5.6%)であったが、リンパ管腫に特徴的な症状はなかった。発生部位は回腸20例(55.6%)、空腸16例(44.4%)で回腸にやや多い傾向を認めた。空腸原発ではTreitz靱帯から60cm以内が12例(75.0%)を占め、回腸原発では回盲弁から60cm以内が14例(70.0%)を占めた。腫瘍は粘膜下腫瘍の形態を呈するものが多く、33例(91.7%)を占めた。腫瘍個数は単発のものが26例(72.2%)、多発のものが10例(27.8%)と単発性が多かった。腫瘍径は0.5cmから20.0cmまで分布し平均は4.8cmであった。

組織学的には単純性、海綿状、嚢胞状に分類されるが¹⁵⁾、単純性が0例、海綿状が21例、嚢胞状

Table 2 Japanese cases of lymphangioma of the small intestine with intussusception

NO.	Author (year)	Age Sex	Symptom	Site	Anatomic Distribution (cm)	Manual reposition	Tumor size	Histology	Treatment	Tumor type
1	Nishimoto ⁵⁾ (1981)	40 M	Abdominal pain	Ileum	Bauhin ~ 9	impossible	3.8cm	Cavernous	Ileocecal resection	SMT
2	Fujimaki ⁶⁾ (1984)	51 F	Abdominal pain	Ileum	Bauhin ~ 23	impossible	3cm	Cystic	Partial resection	Ip
3	Shibata ⁸⁾ (1993)	42 M	Abdominal pain	Ileum	Bauhin ~ 10	impossible	3cm	Cystic	Partial resection	SMT
4	Takano ⁹⁾ (1996)	27 M	Abdominal pain	Jejunum	Treitz ~ 30	Possible	3.5cm	Cystic	Partial resection	SMT
5	Kizawa ¹⁰⁾ (2000)	0 F	Bleeding	Ileum	Bauhin ~ 0	Possible	4cm	Unknown	Examine suction	Unknown
6	Present case	55 F	Abdominal pain	Ileum	Bauhin ~ 54	impossible	2.7cm	Cavernous	Ileocecal resection	SMT

が12例, 不明3例であった。組織型では海綿状が多く, 組織型が明らかであった症例の63.6%を占めた。

治療は腫瘍を含めた腸管の切除または腫瘍の摘出が原則であり, 報告例では小腸部分切除が25例, 内視鏡的切除および局所切除が3例, 回盲部切除が3例, 結腸右半切除が2例であった。自験例では, 腸重積による腸管壊死を認め, 回盲部切除術を施行した。リンパ管腫は良性腫瘍であり, 悪性化の報告はなく, 診断が可能であれば, 局所切除や部分切除に留め, 可能であれば腹腔鏡下手術など縮小手術も選択肢と考えられる。

腸重積を合併した小腸リンパ管腫6例 (Table 2) について検討した^{5)6)8)~10)}。年齢は平均35.8歳と, 小腸リンパ管腫全体と比べ若年に多い傾向を認めた。本症例は最も高齢の発症であった。

発生部位は全例回盲弁から60cm以内であり, 本症例も回盲弁から54cmであった。腫瘍個数はすべて単発性であった。腫瘍径は平均3.3cmで全体と比べ小さい傾向を認めた。本症例は亜有茎性で最大径は2.7cmで他の症例と比較し最も小さかった。腸重積発症の原因には肉眼型と腫瘍径に関連性がみられた。すなわち, 有茎性や亜有茎性は小さく, 無茎性の腫瘍は大きいものが多かった。したがって, 有茎性の腫瘍は腸管壁に対する可動性が大きく, 小さい腫瘍でも腸重積を起こしやすいと考えられた。

八尾ら⁴⁾の報告では小腸腫瘍の腸重積合併率は悪性腫瘍で8.1%, 良性腫瘍で15.1%であった。リ

ンパ管腫の腸重積合併率は, 16.7%と他の小腸腫瘍に比べ腸重積を合併しやすい傾向を認めた。腸重積を合併したリンパ管腫の特徴は, 比較的若年発症で回盲弁に近く単発性の嚢胞状であった。また, 本症例のように, リンパ管腫にメッケル憩室を合併した症例の報告はなかった。

成人腸重積を合併した回腸リンパ管腫の1例を経験した。成人腸重積の原因の一つとして, 小腸リンパ管腫を念頭におき, 診断可能であれば腹腔鏡下手術など縮小手術に留めることが可能であると考えられた。

文 献

- 1) 広瀬弘明, 岡部郁夫, 森田 健: 小児リンパ管腫88例の検討. 日臨外医会誌 48: 1833—1839, 1987
- 2) 川手 進, 大和田進, 中村正治ほか: 巨大大網嚢腫性リンパ管腫の1例. 日消外会誌 27: 1999—2002, 1994
- 3) Good CA: Tumors of small intestine. Am J Roentgenol 89: 685—705, 1963
- 4) 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
- 5) 西本憲治, 佐々木襄, 川口正晴ほか: 回腸リンパ管腫を伴った成人腸重積の1治験例. 広島医 34: 795—797, 1981
- 6) 藤巻英二, 狩野 敦, 折居正之ほか: 大腸内視鏡で観察できた回腸リンパ管腫の1例. Gastroenterol Endosc 26: 1337—1343, 1984
- 7) 有賀浩子, 宗像康博, 岡本講平ほか: 急性腹症で発症した小腸リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 52: 2407—2410, 1991
- 8) 柴田 均, 藤田ひろ子, 花村 直ほか: 成人腸重積を伴った回腸リンパ管腫の1例. 外科 55:

- 806—808, 1993
- 9) 高野 環, 加藤邦隆, 宮沢正久ほか: 空腸リンパ管腫による成人腸重積症の1例. 消外 19: 243—247, 1996
- 10) 木澤敏毅, 大崎雅也, 依田弥奈子ほか: 回盲部リンパ管腫疑いの1例. 臨小児医 48: 165—167, 2000
- 11) 武市卒之, 飯島哲夫, 村田滋喜ほか: 小腸リンパ管腫の1例. 日臨外会誌 63: 911—914, 2002
- 12) 奥山祐右, 岡島達也, 鈴木隆裕ほか: 超音波内視鏡で術前診断し, 内視鏡的摘除で治療しえた回腸末端部リンパ管腫の1例. Gastroenterol Endosc 44: 1175—1179, 2002
- 13) 木崎義行, 内田広夫, 藤野順子ほか: 回腸重複症に併発した回腸リンパ管腫の1例. 日小外会誌 39: 636—638, 2003
- 14) 本田邦臣, 落合利彰, 伊原栄吉ほか: 著明な貧血を呈し術前に診断しえた小腸リンパ管腫の1例. 胃と腸 39: 961—966, 2004
- 15) Wegner WD: Uber lymphangioma. Langerbech Arch Klin Chir 20: 641, 1877

A Case of Lymphangioma of the Ileum Presenting with Intussusception

Wataru Onozato, Takatoshi Nakamura, Kazuhiko Hatate, Heita Ozawa,
Takeo Satou, Yukihito Kokuba, Atushi Ihara and Masahiko Watanabe
Department of Surgery, Kitasato University School of Medicine

A 55-year-old woman. Experiencing abdominal pain and vomiting after lunch and initially diagnosed with bowel obstruction and treated conservatively elsewhere by intestinal tube insertion had worsening abdominal pain 5 days after onset. Extreme overall abdominal tenderness and rebound tenderness were accompanied by a fist-sized mass palpated in the right lower quadrant. Enhanced abdominal Computed Tomography (CT) indicated target signs in the ileocecum suggesting peritonitis due to intussusception and necessitating emergency surgery. Perioperative findings confirmed ileal-ileal-colonic intussusception. The large dark red sausage-like mass found in the ileocecum could not be manual by repositioned, necessitating ileocecal resection. The resected specimen was a submucosal tumor 2.7cm long located 54cm from the distal ileum. Meckel's diverticulum was noted 20cm from the distal ileum. Histopathology confirmed lymphangioma of the ileum. Lymphangioma of the small intestine is so rare that only 36 cases have been reported in Japan. Given that only 6 such cases involved intussusception, our case is extremely rare. Lymphangioma of the small intestine should thus be considered in cases of intussusception in adults.

Key words : lymphangioma of small intestine, intussusception, Meckel's diverticulum

[Jpn J Gastroenterol Surg 40 : 1531—1535, 2007]

Reprint requests : Wataru Onozato Department of Surgery, School of Medicine Kitasato University
1-15-1 Kitasato, Sagami-hara, 228-8555 JAPAN

Accepted : January 31, 2007