症例報告

成人腸間膜リンパ管腫の1切除例

千葉徳洲会病院外科. 同 病理*

藤川 幸一 高森 繁 渡辺英二郎 鈴木 隆 清水 義明 宍倉 有里*

症例は左側腹部の激痛を主訴に来院した 20 歳の女性で,約4年前にも下腹部痛にて来院し腸間膜嚢腫と診断されていたが,主訴の自然消失により来院が途絶えていた。今回,US,CT,MRI,小腸造影,腹部血管造影 X 線検査所見から出血,感染,捻転などを伴う腸間膜嚢腫の術前診断で開腹した。開腹時,空腸間膜に 9×9×6cm の軟らかい白色調の腫瘍と腸間膜根部へ向かう漿膜の肥厚を認め,約20cm の小腸とともに腫瘍を切除した。病理組織学的にはリンパ管の拡張を伴う多房性の嚢胞内に乳び様液体が充満したリンパ管腫であった。成人腸間膜リンパ管腫は比較的まれな疾患であり本邦報告例を含め報告する。

はじめに

腹痛で発症した比較的まれな成人腸間膜リンパ 管腫を経験したので、本邦報告例を加えて報告す る.

症 例

患者:20歳,女性 主訴:左側腹部痛 既往歴:特記事項なし.

現病歴:約4年前,下腹部痛を主訴に当院外来を受診した.US,CTなどで腸間膜囊腫と診断したが,主訴の自然消失により来院が途絶えていた.しかし,平成16年2月初旬,左側腹部に激痛が出現した.以後,ほぼ毎週疼痛を繰り返すため入院となった.

入院時現症:血圧 128/70mmHg, 脈拍 66 回/分,体温 37.0℃, 眼球結膜の黄染や結膜の貧血は認めず, 胸部にも異常はない. 左側腹部に可動性不良の小児頭大の腫瘤を触知し, 軽度の圧痛を認めたが, 反跳痛, 筋性防御は認めなかった.

入 院 時 検 査 所 見: WBC 6,000/μl, Hb 12.8g/dl, Ht 37.5%, Plt 26.2×10⁴/mm³, 生化学検査に 異常なく, 腫瘍マーカーも正常範囲内 (CEA 0.5

<2007年3月28日受理>別刷請求先:藤川 幸一 〒300-1211 牛久市柏田町1589—3 つくばセントラ ル病院外科 ng/ml, CA19-9 10U/ml) であった.

腹部単純 X 線検査: 異常ガス像や腫瘤陰影などの異常所見を認めなかった.

腹部超音波検査:左側腹部に呼吸性移動を示す 多房性嚢胞性腫瘤を認めた(Fig. 1).

腹部造影 CT: 左腸腰筋前面に 6×11×7cm 大の低吸収域を示す腫隆像を認めたが造影効果に乏しくわずかに隔壁の描出を認めた (Fig. 2).

ガストロ小腸造影検査:腫隆陰影は小腸を圧排 しているが腸管との交通は認めなかった(Fig. 3).

腹部 MRI: T1 強調画像で低信号, T2 強調画像 で高信号な内部に隔壁を伴う 6×11×7cm 大の囊 胞性病変を認めた (Fig. 4).

腹部血管造影検査:腫瘍による濃染像や血管圧 排所見などの異常所見は認めなかった.

以上の所見から,腸間膜嚢腫の捻転による疼痛 発作を疑って開腹手術を施行した.

手術所見:全身麻酔下に下腹部正中切開にて開腹した.トライツ靭帯より約60cm 肛側の小腸間膜に超手拳大の灰白色の腫瘍を認めた.腫瘍部から腸間膜根部へ向かう腸間膜には漿膜の肥厚がみられ,腫瘍部から腸間膜根部に向かう線を軸として横軸方向に捻転を繰り返していたことが推測された.小腸20cmを含め腫瘍を摘出した(Fig.5).

摘出標本所見:腫瘍径は9×9×6cm で,割面で

2007年10月 61(1707)

Fig. 1 Ultrasonography showed cystic lesions with septum (arrow) on the left abdominal cavity.



Fig. 2 Abdominal CT showed low density mass $(6 \times 11 \times 7 \text{cm})$ with septum (arrow) in front of the left iliopsoas muscle.



は大小不同の多房性囊胞を認め、囊胞内容液は乳 び様であった.

病理組織学的検査所見:扁平な内皮細胞に被覆された種々の程度に拡張したリンパ管から腫瘍が構成されていた。また、間質には平滑筋細胞やリンパ球の小集簇像が多数認められ「成人型リンパ管腫」と診断した(Fig. 6).

術後経過:術後経過は良好で,第7術後病日目 に退院した.術後2年6か月の現在,再発を認め ていない.

考 察

成人の腸間膜リンパ管腫は比較的まれな疾患で,本邦では酒井ら¹⁾が 1990 年に 32 例を集計している. 医学中央雑誌・MEDLINE および関連文献

Fig. 3 Small bowel series showed pitting of the small bowel but it didn't connect to the lumen.

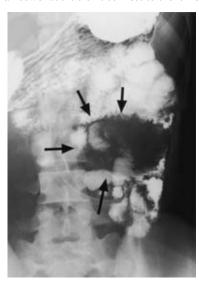
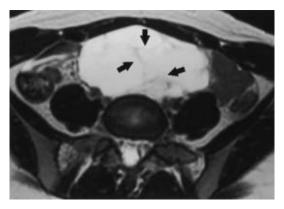


Fig. 4 Abdominal magnetic resonance imaging. T2weighted image showed a high-intensity cystic mass with septum (arrow).



により 1990~2006 年まで「成人 (Adult)」「腸間膜リンパ管腫 (mesenteric lymphangioma)」などのキーワードで検索をした結果、その後の報告その後の報告例と自験例を加え 57 例を集計できた.

症状は集計 57 例では腹痛が最も多く約半数を 占め(49.1%),ついで腫瘤触知(24.6%),腹部膨 満(7.0%)などを主訴としていた.しかし,無症 状から腹膜炎様症状までさまざまな主訴を呈する 症例が存在しており本疾患は特異的な主訴はない とされている.

Fig. 5 There was a large white soft elastic tumor in the messentery of the jejunum about 60 cm from the Treiz ligament and the serosa from the tumor to the root of mesentery was thickened.



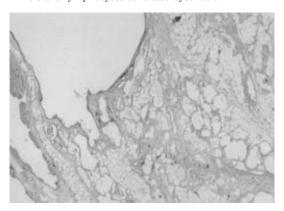
また、腹痛の原因として腸管の捻転は8例、腫瘍内の出血が6例に認められた.

男女比は27:30でやや女性に多く,平均年齢は40.0歳であった. 発生部位は空腸間膜15例,回腸間膜13例,結腸間膜13例,部位不明の小腸11例で,多発例2例,腸間膜根部例2例が含まれている.

リンパ管腫の成因はさまざまであるが、胎生期にリンパ管が静脈系と連結しなかったとする説²、出血や炎症によるリンパ管の閉塞が成因とする説^{3,4}などが有力である.

従来、術前診断は困難とされていたが⁵⁾、画像診断法の発達によって術前に診断される症例が増加している⁶⁾⁷⁾.超音波検査が有効で単房性または隔壁を有する多房性の嚢胞構造の描出が特徴的である¹⁾⁸⁾.CTでも典型的には隔壁を有する低吸収域として描出されることが多く、造影CTでは被膜・隔壁が淡く造影される⁹⁾.また、内容が乳びであるとfat density に近く、血性であるとCT 値が高くなり充実性腫瘍に近似した像を呈する¹⁰⁾.MRIでの典型像はT1強調像で低信号、T2強調像で高信号となる。しかし、内容液が血性の場合や乳びを多く含んだ場合にはT1強調像、T2強調像ともに高信号となる¹¹⁾¹²⁾.穿刺吸引によるリンパ球と乳び液の証明がリンパ管腫の診断に有用である

Fig. 6 Microscopic examination of the specimen (H.E.×10): The cysts was filled with chyle, endothelial cells covered inner surface, and dilated lymphatic vessels, many small clusters of smooth muscle and lymphocytes consisted cyst wall.



との報告もある13).

リンパ管腫は周囲組織への浸潤傾向を有するため外科切除術が第1選択治療であり完全切除すれば再発はまれである¹⁴. 腫瘍が腸管に近接している自験例では完全切除を目指して腸管合併切除術を行った. 集計例でも,57例中28例(49.1%)に腸管合併切除が施行されている. また,最近では腹腔鏡的切除も行われ,良好な成績が報告されており本症例でも採用を検討すべきであった¹⁵⁾¹⁶.

一方、切除困難例には開窓術 $^{(7)}$ やアルコール $^{(8)}$ 、糖 $^{(9)}$, OK $^{(432^{20)}}$ などを用いた硬化療法も報告されている.

しかし,画像的に腸間膜リンパ管腫と鑑別困難な腸間膜囊胞癌の報告例もあり²¹⁾,十分慎重に診断治療を行う必要がある.

リンパ管腫は病理組織学的に単純性、海綿状、 嚢胞状の3型に分類されている²²⁾が、Gerster²³⁾は 海綿状リンパ管腫と嚢胞状リンパ管腫は時に混在 しており明確には分類できないとしている.

また、Takiff ら¹⁴⁾は腸間膜囊腫とリンパ管腫は 厳密に区別すべきであるとし、リンパ管腫の病理 組織学的診断基準として、①嚢胞の内腔は立方状、 円柱状上皮というよりむしろ扁平な内皮で覆われ ていること、②嚢胞壁に小さなリンパ腔が存在す ること、③嚢胞壁内にびまん性のリンパ球の集簇、 またはリンパ節に似た構造などリンパ組織が多数 2007年10月 63(1709)

存在すること、④脂質を含んだ泡沫細胞が存在すること、⑤嚢腫壁に平滑筋が存在することの5項目を挙げている。自験例はこれらをほぼ満たしておりリンパ管腫と診断した。

本疾患の予後は極めて良好であるが,不完全な切除が原因と思われる再発²⁴⁾や合併症による死亡例²⁵⁾²⁶⁾の報告もあり,再発や死亡のない慎重で丁寧な治療の遂行が重要である.

文 献

- 酒井章男、上原孝一郎、清松一郎ほか:成人腸間 膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 51:773— 779.1990
- Godart S: Embryological significance of lymphangioma. Arch Dis Child 41: 204—206, 1966
- Gleason TJ, Yuh WT, Tali ET et al: Traumatic cervical cystic lymphangioma in an adult. Ann Otol Rhino 102: 564—566, 1993
- 4) Schmidt M: Intra-abdominal lymphangioma. Kans Med **93**: 149—150, 1992
- Walker AR, Putnam TC: Omental, mesenteric and retroperitoneal cysts: a clinical study of 33 new cases. Ann Surg 178: 13—19, 1973
- 6) 三村卓司,金田道弘,小野田正ほか:術前診断が可能であった成人腸間膜嚢胞性リンパ管腫の1例. 臨放 40:281-284,1995
- 7) 田辺 博, 今井直基, 渡辺 進ほか: 急性腹症を 呈した成人腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会 誌 **53**:1665—1669,1992
- 8) Chou YH, Tiu CM, Lui WY et al: Mesenteric and omental cysts: an ultrasonographic and clinical study of 15 patients. Gastrointest Radiol 16: 311—314, 1991
- Davidson AJ, Hartman DS: Lymphangioma of the retroperitoneum: CT and sonographic characteristic. Radiology 175: 507—510, 1990
- 10) Feldberg MA, Hendriks AV, Van Leeuwen MS et al: Retroperitoneal cystic lymphangioma section imaging in two cases, and review of the literature. Clin Imaging 14: 26—30, 1990
- 11) Ros PR, Olmsted WW, Moser RP Jr et al: Mesenteric and omental cysts: histologic classification with imaging correlation. Radiology 164: 327—332, 1987

12) Stoupis C, Ros PR, Abbitt PL et al: Bubbles in the belly: imaging of cystic mesenteric or omental masses. Radiographics 14: 729—737, 1994

- 13) Sarno R, Carter BL, Bankoff MS et al: Cystic lymphangiomas: CT diagnosis and thin needle aspiration. Br J Radiol 57: 424—426, 1984
- 14) Takiff H, Calabria R, Yin L et al : Mesenteric cysts and intra-abdominal cystic lymphangiomas. Arch Surg 120: 1266—1269, 1985
- 15) 佐野 純,山田 誠,梅本敬夫ほか:腹腔鏡下に 摘出した成人腸間膜乳糜嚢胞の1例.日鏡外会誌 6:569-574,2001
- 16) Vara-Thorbeck C, Toscano Mendez R, Herrainz Hidalgo R et al: Laparoscopic resection of a giant mesenteric lymphangioma. Eur J Surg 163: 395—396, 1997
- 17) 内田信弘, 柳田康弘, 荒井和男ほか:小網嚢腫の 1 例. 日消外会誌 **28**: 1867—1871, 1995
- 18) Moni S, Ronald KH, Philip DS et al: Alcohol ablation of a mesenteric lymphangioma. J Vasc Inerv Radiol 11: 247—250, 2000
- 19) 上原力也, 川畑 勉, 山内和雄ほか:急性腹症を 呈した巨大腸間膜リンパ管嚢腫の1例. 沖縄医会 誌 **10**:61—64,1989
- 20) 徳原克治,濱田吉則,渡邊健太郎ほか:巨大腸間 膜リンパ管腫に対し腹腔鏡補助下嚢腫亜全摘術 と硬化療法を併用した1例.日小児外会誌 39: 970—975,2003
- 21) 原川伊寿,蜂須賀喜多男,山口晃弘ほか:腸間膜嚢胞腺癌の1例.日消外会誌 20:2397—2400, 1987
- 22) Wegner G: Uber lymphangiome. Arch Klin Chir **20**: 641—707, 1877
- 23) Gerster JCR: Retroperitoneal chyle cysts with a special reference to the lymphangioma. Ann Surg 110: 389—410, 1939
- 24) 横井健二、川上和之、川浦幸光:再発腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 56:2726—2730, 1995
- 25) 相川直樹, 吉崎 聡, 鴇田典夫ほか: 腸間膜嚢腫の1治験例と文献的考察. 臨外 27:1165—1169, 1972
- 26) 広原公昭, 松崎正一, 有山雄基ほか:吸収不良症 候群を来した腸間膜リンパ管腫症の1割検例. 日 内会誌 **55**:266,1966

A Resected Case of Adult Mesenteric Lymphangioma

Kouichi Fujikawa, Shigeru Takamori, Hidejirou Watanabe, Takashi Suzuki, Yoshiaki Simizu and Yuri Shishikura* Department of Surgery and Department of Pathology*, Chiba Tokusyuukai Hospital

Adult mesenteric lymphangioma is relatively rare. A 20-year-old woman seen for lower abdominal pain 4 years ago and diagnosed a mesenteric cyst. But she suspended coming our hospital because of disappearance of pain. This time she was admitted for left flank pain. US, CT, and MRI showed a cystic lesion with septal structures. After a small bowel series and angiography, we diagnosed the condition as bleeding, infection, or torsion of a mesenteric cystic tumor. Laparotomy showed a soft white $9 \times 9 \times 6$ cm tumor in the mesentery of the jejunum with thickening of serosa from the tumor to the mesentery root. The tumor was excised with about 20cm of the jejunum. Histological findings showed a multiple cystic tumor with lymphatic dilation. The cyst was filled with chyle. Histological examination confirmed the diagnosis of lymphangioma. We review the case in the context of the Japanese literatures.

Key words: mesenteric lymphangioma, adult

(Jpn J Gastroenterol Surg 40: 1706—1710, 2007)

Reprint requests: Kouichi Fujikawa Department of Surgery, Tsukuba Central Hospital

1589-3 Kashiwada-cho, Ushiku, 300-1211 JAPAN

Accepted: March 28, 2007