

症例報告

増大傾向を認めた脾リンパ管腫の1例

愛知県厚生連加茂病院外科

柴田 耕治 塩見 正哉 東島由一郎 渡邊 克隆
尾辻 英彦 山口 直哉 神谷 順一

症例は58歳の男性で、56歳の時に左腎癌で根治的腎摘除術を受けている。腫瘍の大きさは72mmでありリンパ節転移は陰性であった。術後はインターフェロン治療を施行した。術前や術直後の画像診断では脾臓に腫瘍は認めなかったが、術後6か月のCTで脾臓に14×10mmの大きさの腫瘤が出現した。術後16か月には腫瘍は20×16mmに増大したため、腎癌脾転移を疑い、脾臓を摘出した。腫瘍は淡赤色スポンジ様であり、病理組織学的に脾リンパ管腫と診断した。最近24年間の日本語文献検索では増大傾向を認めた脾リンパ管腫の報告は4例であり、脾リンパ管腫が新たに出現したとの報告はない。本例が急速に増大したものか、新たに出現したものか不明であるが、まれなりんぱ管腫と考え報告する。

はじめに

腎癌術後の経過観察中に発見され、その後に増大した脾リンパ管腫を経験した。増大傾向を認めた脾リンパ管腫の報告は最近24年間では4例と少なく、脾リンパ管腫があらたに出現したとの報告はない。

症 例

患者：58歳，男性

主訴：なし

既往歴：1年6か月前に左腎細胞癌で根治的腎摘除術を受けた。腫瘍の大きさは72mm，腎癌取扱い規約に従うと，発育様式は膨張型，組織学的には淡明細胞癌であり，異型度II，INF α ，静脈浸潤はなく，pT2・pN0・pM0であった¹⁾。術後インターフェロン α -2bによる治療を週3回の割合で受けた。なお，術前画像診断では脾腫瘍は認めず，術後2か月の時点でCTを撮影しているが，この時に脾臓に腫瘍は指摘できなかった（Fig. 1）。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：腎摘出6か月後のCTで脾臓の腫瘍を指摘された（Fig. 1）。腫瘍の大きさは14×10mm

であった。腫瘍は不整形で内部は均一であり，脾臓実質より低濃度であった。その1か月後に造影CTを行ったが，造影効果は乏しかった。腎摘出16か月後にはCT上腫瘍は20×16mmに増大していた（Fig. 2）。性状に変化は認めず，造影CTでも造影効果は乏しいままであった。MRIのT1強調画像では腫瘍は低信号であり，T2強調画像では不均一な高信号を呈した（Fig. 3）。腹部超音波検査では脾臓の上極に境界不明瞭な腫瘍を認めた。25×24mmの大きさで脾臓実質より少し高エコーであった。摘出した左腎癌の造影CT所見では著明な造影効果を示し，血管造影ではhypervascularであったため，脾腫瘍とは異なる画像所見であったが，新たに出現し増大していることから腎癌の脾臓転移を否定できなかった。各種画像診断で他の臓器には転移再発を疑う所見は認めなかったため，脾臓摘出の目的で外科入院となった。

入院時現症：身長167cm，体重62kgで腹部正中に手術痕を認めた。腹部は平坦で腫瘍は触知しなかった。

入院時検査所見：とくに異常は認めなかった。腎機能も正常であった。

手術所見：左開胸開腹で脾臓を摘出した。脾下極は大網と高度に癒着していたが，脾門の処理は

<2007年5月30日受理>別刷請求先：柴田 耕治
〒471-8505 豊田市元城町3-17 愛知県厚生連加茂病院外科

Fig. 1 Although CT showed no tumor in the spleen 2 months after nephrectomy (the left), CT disclosed a splenic tumor 14×10 mm in size 6 months after the operation (the right).

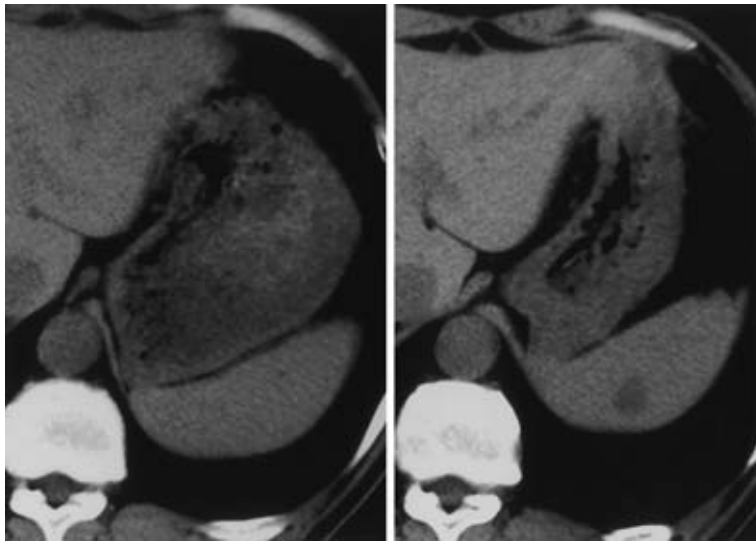


Fig. 2 CT showed a size up of the tumor to 20×16 mm 16 months after the operation.



容易であった。手術時間は1時間51分、出血量は532グラムであった。

摘出標本：脾臓の大きさは95×80×40mm、脾臓被膜に異常は認めなかった。断面を作成して検討すると、上極に19×19mmの淡赤色のスポンジ様の腫瘍を認めた (Fig. 4)。内部には多数の白色透明な小嚢胞の集簇を認めた。嚢胞は最大でも1mm程度の大きさであった。ホルマリン固定後には腫瘍は白色スポンジ様であり、中央部は褐色を帯びていた。

病理組織学的検査所見：病変の内部には管腔構造を多数認めた (Fig. 5)。病変は被包化されず、管腔構造の間に正常の脾臓組織が存在していた。管腔内部にはエオジン好性の浸出性液を認め、赤血球を少数認めた。管腔内面の細胞は扁平でCD34陽性であった。海綿状リンパ管腫と診断した。

術後経過：術後経過は良好であり、術後15日目に退院した。脾臓摘出11か月後の現在、腎癌再発の所見は認めていない。

考 察

脾リンパ管腫は病理組織学的に脾嚢胞性疾患に含まれている。McClureら²⁾は脾嚢胞を真性と仮性に分け、真性嚢胞をさらに上皮性・内皮性・寄生虫性の3群に分類した。リンパ管腫、血管腫、polycystic disease、漿液性嚢胞などを内皮性嚢胞としている。リンパ管腫は脾嚢胞性疾患の中で最も多く、脾嚢胞性疾患383例中66例(17%)との報告がある³⁾。次に多いのが、類上皮嚢胞15%、血管腫14%である。なお、脾嚢胞の頻度に関しては剖検42,327例のうち32例(0.08%)と報告されている⁴⁾。

リンパ管腫は、病理組織学的には単純性・海綿

Fig. 3 MR T1 weighted imaging showed a low intensity tumor in the spleen (the left). The tumor had high intensity on T2 weighted imaging (the right).

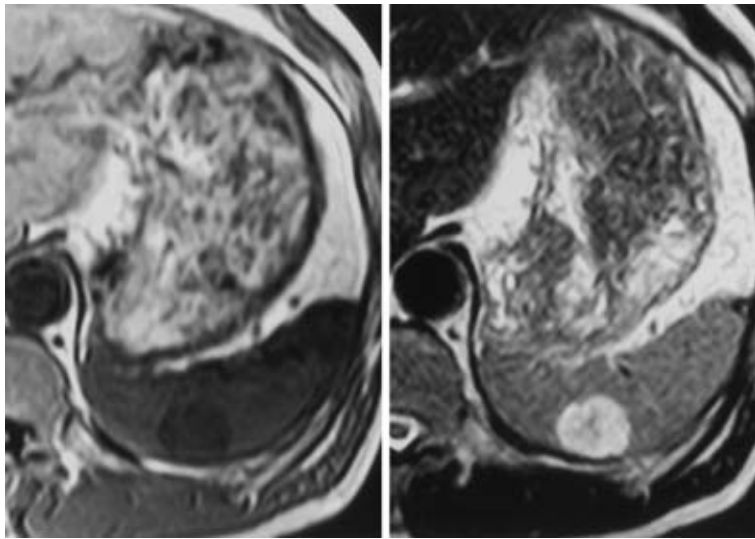


Fig. 4 The tumor has a spongy structure with pale red color on cut surface.

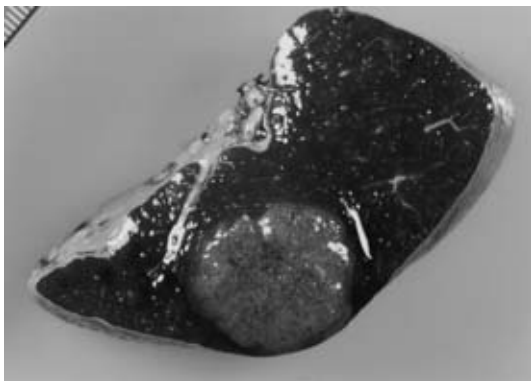
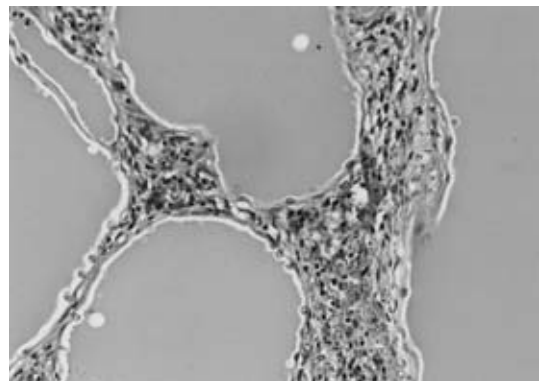


Fig. 5 Histopathological diagnosis of the tumor was a cavernous lymphangioma.



状・嚢胞状の3型に分類され、多くは嚢胞状であるとされている。しかし、水谷ら⁵⁾は記載の明らかな本邦報告37例では、単純性0例、海綿状21例、嚢胞状16例であり、海綿状のものがやや多いと報告している。本例も海綿状リンパ管腫であった。

水谷は自覚症状が記載されている脾リンパ管腫本邦報告例98例を集計し、腹痛が26%と最も多く、腫瘤触知が20%、腹部違和感が16%の順(重複例あり)であったと報告している。自覚症状がなく、超音波検査、CTなどにより発見された症例

は40%を占め、他疾患で経過観察中に発見されたものが25%、検診や人間ドックが発見の契機になったものが15%であった。本例も腎癌術後の経過観察中に発見された症例である。なお、水谷は年齢と性別の記載のある99例を集計し、年齢は平均44.6歳であったと述べている。性別については女性76例、男性23例であり、女性が男性の3.3倍であったことを強調している。

医学中央雑誌で「脾リンパ管腫」のキーワードで検索したところ、1983年から2006年までの24

Table 1 The reports of splenic lymphangioma with rapid growth

| Case | Author | Year | Age/Sex | History of malignancy | Symptom | Number of lymphangioma | Size increase/period | Treatment |
|------|-------------------------|------|---------|--|-----------------------------------|------------------------|----------------------------|-------------|
| 1 | Nishida ⁶⁾ | 1994 | 70/M | — | body weight loss appetite loss | 1 | 6 → 10cm/8M | splenectomy |
| 2 | Degawa ⁷⁾ | 1995 | 61/F | — | — | 1 | 3.9×3.0 → 5.3×4.3cm/3M | splenectomy |
| 3 | Matsumoto ⁸⁾ | 1997 | 74/F | — | — | 1 | 2.5 → 4cm/12M | splenectomy |
| 4 | Yoshimoto ⁹⁾ | 2004 | 63/F | breast cancer lung cancer renal cancer | — | 2 | ND, ND → 4.5, 6cm/13M | splenectomy |
| 5 | Present case | | 58/M | | — | 1 | 1.4×1.0 → 2.0×1.6cm/10M | splenectomy |

ND : not described

年間に報告された脾リンパ管腫は79例であった。新たに出現した症例の報告はなく、増大傾向を認めた症例は4例(5%)のみであった(Table 1)^{6)~9)}。いずれの報告においても、増大傾向に関する考察は加えられていない。

本例では腎摘出後に新たに発見されたことから、微小なリンパ管腫が急速に成長したか、後天的な機序で発生したものと考えている。ただし、本例の病理組織学的検査所見は典型的なリンパ管腫であり、詳細を推測することはできなかった。なお、腎摘出術後に発見された脾リンパ管腫はなく、また腎癌やウイルス性肝炎に対するインターフェロン治療後に脾リンパ管腫が発見されたとの報告もない。

脾リンパ管腫の画像診断上の特徴は、①超音波検査：多数の嚢胞を伴う境界不鮮明な高エコー域¹⁰⁾、②CT：境界明瞭な造影効果のない低濃度領域¹¹⁾、③MRI：T1強調画像での低信号、T2強調画像での高信号、が挙げられている。本例ではCTやMRIではこのような所見を呈していたが、腫瘍が海綿状で嚢胞が微小なものであったためか超音波検査では嚢胞性腫瘍とは診断できなかった。

本例では新たに出現し、増大傾向を認めたことから、腎癌脾転移を強く疑った。しかし、腎癌の転移巣の多くは画像診断上、極めて血管に富むとされており¹²⁾、本例での所見とは異なっていた。また、腎癌の孤立性脾転移の頻度はまれで、本邦では2例が報告されているに過ぎないことを考慮すると¹³⁾、診断に関して検討の余地があったと反省している。

脾リンパ管腫の手術適応については、画像上典型的な所見を呈し術前診断が可能な場合には経過観察でよいとする意見がある。無症状で偶然発見されたような症例で、リンパ管腫に典型的な所見を呈する場合には摘出術の適応はないと思われる。しかし、臨床症状を有する場合や、増大傾向を示す場合、あるいは悪性疾患との鑑別が困難な場合には脾摘出術の適応と考える。本例は新たに出現し、増大傾向を示したため、脾摘出術を行った。

なお、本論文の要旨は第270回東海外科学会(2005年10月)において発表した。

稿を終えるにあたり、貴重な症例を紹介して頂いた当院泌尿器科彦坂敦也先生、病理組織学的診断にご指導を賜りました病理科成田道彦先生に深謝いたします。

文 献

- 1) 日本泌尿器科学会, 日本病理学会, 日本医学放射線学会: 腎癌取扱い規約. 第3版. 金原出版, 東京, 1999, p66—78
- 2) McClure RD, Altmeier WA: Cysts of the spleen. *Ann Surg* 116: 98—102, 1942
- 3) 櫻本 薫, 唐司則之, 天野穂高ほか: 脾リンパ管腫の1例. *千葉医誌* 63: 225—229, 1987
- 4) Robbins FG, Yellin AE, Lingua RW et al: Splenic epidermoid cysts. *Ann Surg* 187: 231—235, 1978
- 5) 水谷憲威, 飯田辰美, 後藤全宏ほか: 石灰化を伴い血清CA19-9値が高値を示した脾リンパ管腫の1例. *日臨外会誌* 63: 706—712, 2002
- 6) 西田卓弘, 梶原啓司, 石川 啓ほか: 脾リンパ管腫の1例. *佐世保病紀* 19: 63—66, 1994
- 7) 出川寿一, 渡辺建詞, 富川伸二ほか: 脾リンパ管腫の2例. *日臨外医会誌* 56: 620—626, 1995
- 8) 松本 崇, 大鶴 実, 川崎靖仁ほか: 脾リンパ管腫の1例. *日臨外医会誌* 58: 496, 1997
- 9) 吉本明浩, 奥田純一, 今野 理ほか: 脾リンパ管腫の1例. *日臨外会誌* 65: 578, 2004

- 10) 権藤守男, 田中 容, 霞富士雄ほか: 脾海綿状リンパ管腫の1例. 臨放 30: 625—628, 1985
- 11) 西口弘恭, 清水俊寿, 大村 誠ほか: 脾原発実質性腫瘍. 臨放 36: 1563—1568, 1991
- 12) 町田喜久雄, 河辺香月: 泌尿器科画像診断. 第1版. 金原出版, 東京, 1986, p244—245
- 13) 鈴木丈博, 菅谷公男, 小倉泰伸ほか: 脾転移を来した腎細胞癌の1例. 泌外 9: 1079—1081, 1996

A Case of Splenic Lymphangioma with Rapid Growth

Koji Shibata, Masaya Shiomi, Yuichiro Tojima, Katsutaka Watanabe,
Hidehiko Otsuji, Naoya Yamaguchi and Junichi Kamiya
Department of Surgery, Aichiken Koseiren Kamo Hospital

The patient is a 58-year-old man underwent radical nephrectomy for left renal cell carcinoma at age 56 to remove a 72mm tumor negative for lymph node metastasis. He underwent adjuvant interferon therapy. Although preoperative imaging diagnosis 2 months after the operation showed no splenic tumor, computed tomography (CT) showed a 14×10mm splenic tumor 6 months postoperatively. After the tumor grew to 20×16 mm, we conducted a splenectomy based on a diagnosis of renal cell carcinoma metastasis. The histopathological diagnosis was a cavernous lymphangioma of the spleen. In our survey of the Japanese literature on splenic lymphangioma for the last 24 years showed only 4 reports of rapidly growing splenic lymphangioma. We have found no reports of newly developed splenic lymphangioma. This tumor may thus be rare rapidly growing splenic lymphangioma.

Key words : splenic lymphangioma, nephrectomy

[Jpn J Gastroenterol Surg 40 : 1933—1937, 2007]

Reprint requests : Koji Shibata Department of Surgery, Aichiken Koseiren Kamo Hospital
3-17 Motoshiro-cho, Toyota, 471-8505 JAPAN

Accepted : May 30, 2007