症 例

右胸壁巨大神経鞘腫切除後に乳糜胸を来した 1 例

塚本 遥^{*1}, 尾高 真^{*1}, 仲田 健男^{*1}
 矢部 三男^{*1}, 秋葉 直志^{*1}, 大塚 崇^{*2}

要 旨

症例は 66 歳, 女性. 胸部レントゲン異常陰影を指摘され当院を紹介受診した. 胸部 CT 検査で右胸腔尾側に長径 12 cm の腫瘍を認めた. 胸部 MRI 検査にて T1 強調画像で高信号, T2 強調画像で低信号を示し嚢胞性腫瘍を疑う所見であった. 腫瘍摘出術を施行し神経鞘腫と診断した. 術翌日より約 1,000 ml/day の乳糜排水を認め乳糜胸と診断した. 絶食・高カロリー輸液を行ったが改善を認めないため, 術後 7 日目に胸腔鏡手術を施行した. 腫瘍剥離面の横隔膜に近い胸壁から乳糜が漏出する索状物を見出しクリッピングした. 腫瘍剥離部の頭尾側で胸管をクリッピングした. その後にも胸壁からわずかに乳糜漏を認めたため, 可及的にクリッピングし漏出部位を閉鎖した. 術後約 200 ml/day の乳糜漏が持続し, 再手術後 14 日目に OK432 10KE で胸膜癒着術を施行し乳糜胸は停止した. 右胸壁巨大神経鞘腫術後に胸壁から乳糜漏を来した稀な症例を経験した.

索引用語: 術後乳糜胸, 神経鞘腫, 胸腔鏡手術

postoperative chylothorax, schwannoma, thoracoscopic surgery

はじめに

乳糜胸は胸部外科手術後に発生する合併症の一つであり, 治療に難渋することがある. 今回我々は右胸腔尾側を占める巨大神経鞘腫切除後に胸壁からの乳糜漏出を認めた症例を経験したので文献的考察を含めて報告する.

症 例: 66 歳, 女性.

主 訴: 胸部レントゲン異常陰影.

既往歴: 小児期腎臓病で加療歴あり. 人工股関節置換術後.

生活歴: 喫煙歴なし. 機会飲酒.

現病歴: 初めて受けた健康診断で胸部レントゲン異常陰影を指摘され当院を紹介受診した. 胸腹部 CT 検査に

て, 右胸壁に巨大な腫瘍を認め, 治療目的に当科を紹介受診した.

血液検査: 腫瘍マーカーを含めて特記すべき異常所見を認めなかった.

胸部造影 CT 検査 (Fig. 1a, 1b): 右胸腔尾側に長径 12 cm, 壁は比較的均一に造影効果を伴う腫瘤を認めた. 腫瘤内部は液体成分を認め充実成分を認めなかった.

胸部 MRI 検査 (Fig. 1c, 1d): T1 強調画像で高信号, T2 強調画像で低信号を示し, 拡散強調画像で高信号を呈していた. 嚢胞性腫瘍を疑う所見であった.

画像所見・存在部位から嚢胞変性を来した胸壁神経鞘腫と診断し, 手術を施行した (Fig. 2). 手術は第 7 肋間, 後側方切開で開胸した. 壁側胸膜外側に胸腔尾側を占める巨大な腫瘍を認めた. 表面は平滑で肺との癒着を認めなかった. 壁側胸膜を腫瘍に沿って切開し, 腫瘍と共に切除し腫瘍を胸壁から剥離した. 椎体近くの第 10 肋間胸腔背側に腫瘍と連続する索状構造を認め, 索状構造の中核側を結紮し腫瘍を切除した. 索状構造物には肋間静脈と思われる静脈が伴走しており, 腫瘍は肋間神経から発生した神経原性腫瘍を疑う所見であった. 術後出血及び

*1東京慈恵会医科大学附属柏病院外科

*2東京慈恵会医科大学附属病院外科学講座呼吸器, 乳腺・内分泌分野

原稿受付 2020年 3月17日

原稿採択 2020年 6月 4日

本論文の要旨は第 81 回日本臨床外科学会総会 (2019 年 11 月, 高知) において発表した.

Fig. 1 Axial (a) and coronal (b) images obtained using chest contrast computed tomography showing a tumor of approximately 12 cm in diameter in the right chest cavity above the diaphragm. The mass comprised liquid but not solid components. Magnetic resonance imaging of the tumor showing a high signal intensity via T1-weighted imaging (c) and low signal intensity via T2-weighted imaging (d).

乳糜漏予防を目的として腫瘍剥離面にヒトフィブリノゲン組織接着シートを貼付した。切除した腫瘍は表面平滑、球形で 12 cm 大であった。手術時間 2 時間 33 分、出血量 150 ml であった。

病理：摘出検体は 12×13 cm。内容液は暗赤色で、細胞診は class II であった。壁内の細胞は紡錘形異形細胞が比較的密に錯綜配列していた。S100 陽性で α SMA、Desmin は陰性であり神経鞘腫と診断した。腫瘍剥離の一部では Factor VIII 及び D2-40 が陽性で血管やリンパ管の増生を認めた。

術後経過：術翌日までに胸腔内から 600 ml の淡々血性排液を認めた。朝食摂取 2 時間後から排出液が乳白色に変化し乳糜胸と診断した。絶食・補液の保存的加療を行った。しかし術後 6 日目まで連日 1,000 ml 程度の乳糜胸水の排液が持続したため (Fig. 3), 術後 7 日目に乳糜胸に対して手術を施行した (Fig. 4)。手術 3 時間前にアイス

クリームを経口摂取し、胸腔鏡にて手術を開始した。胸壁の腫瘍剥離面に貼付したヒトフィブリノゲン組織接着シートを除去すると、腫瘍剥離面の横隔膜に近い胸壁から乳糜が漏出する索状物を見出した。同部を金属クリップでクリッピングした。術野を観察すると、クリッピングした部位以外の胸壁からわずかな乳糜漏を認めた。そのため、椎体と食道裏面の間に胸管を見出し腫瘍剥離部の頭尾側にてクリッピングし胸管を遮断した。しかし、胸管のクリッピング後にも胸壁からの乳糜漏出は完全には停止せず、可及的に漏出部位をクリップにて閉鎖した。再手術後 1 日目に乳糜胸水排出は 300 ml に減少した。再手術後 7 日目に脂肪制限食を開始した。その後、200 ml/day 前後の排液が続いたため、再手術後 14 日目に OK 432 10KE を胸腔内に投与し胸膜癒着術を行った。その後排液は減少し再手術後 22 日目にドレーンを抜去し、23 日目に退院した。その後 20 ヶ月、胸水貯留を認めること

Fig. 2 Operative field at the time of the first surgery. White arrow: A cord-like structure continuous with the tumor was present on the dorsal side of the 10th intercostal thoracic cavity near the vertebral body, and the tumor was resected by ligating the proximal side of the cord-like structure.
D: diaphragm; RA: right atrium; RLL: right lower lobe; IV: intercostal vein; CW: chest wall; V: vertebra; C: costa.

Fig. 3 Volume of pleural effusion drained throughout the clinical course of the patient. IVH, intravenous hyperalimentation; VATS, video-assisted thoracoscopic surgery.

Fig. 4 Operative field at the time of re-operation. The vessel that leaked chyle from the chest wall was clipped (white arrow), and the thoracic duct was craniocaudally clipped at the tumor ablation site (black arrow). Furthermore, clipping was added to prevent chyle leakage from the chest wall (small arrow).
D: diaphragm; RA: right atrium; V: vertebra; C: costa; TD: thoracic duct; ☆: The site at which the stem from the intercostal nerve was ligated during the initial surgery.

なく外来通院を続けている。

考 察

胸部外科手術後におこる乳糜胸は胸管そのものの損傷による場合と胸管との交通支の損傷による場合が考えられる¹⁾。損傷部位によって乳糜胸の程度は異なる。肺癌術後の乳糜胸は0.5～0.7%程度の発生率とされているが²⁾、縦隔腫瘍術後の乳糜胸は稀であり、リンパ管腫切除後³⁾や胸腺腫切除後⁴⁾に発症した乳糜胸が報告されている。調べた限りでは神経鞘腫術後に発症した乳糜胸の報告は1例であった⁵⁾。

胸管は第二腰椎の高さで乳糜槽から起始し、大動脈と奇静脈の間の後縦隔を上行した後、上縦隔で左静脈角に流入する。しかし、このような通常走行がみられるのは半数であり、多くの走行異常を伴う。胸管の40～60%が奇静脈や肋間静脈、腰静脈に流入し、25～30%が横隔膜レベルで複数本に分かれる⁶⁾と言われる。

術後乳糜胸に対しては、第1に食事制限、脂肪制限食投与と高カロリー輸液などの保存的治療が行われる。近

年ではオクトレオチド皮下持続投与の有効性を論じた報告が多くなされた¹⁾。食道癌術後乳糜胸に対してエチレフリンの投与が有効であったとする報告もある⁷⁾。またリンパ管造影が漏出部位の同定に有用であり、加えて治療効果を得られるとする報告^{2,8)}もある。胸膜癒着術が有効とする報告もある⁹⁾。乳糜胸の約半数に観血的治療が必要とされている¹⁰⁾。手術治療は漏出部位を直接確認同定し結紮ないしクリップする方法と胸管結紮術があげられる。ヒトフィブリノゲン組織接着用シート貼布による閉鎖、ポリグリコン酸吸収性補強シート+フィブリン糊による乳糜漏出部位閉鎖の有効性も報告された¹¹⁾。本症例では乳糜漏量が多く、貼付したシートが漏出の圧に耐え切れなかったために接着用シート貼布による閉鎖が無効であったと考えられた。低侵襲な胸腔鏡手術が行われることが多い¹²⁾。上記のような方法を組み合わせることで乳糜漏を治療しえる場合も多く、患者全身状態、乳糜漏の状態に合わせた治療方法の選択が必要である。

手術適応の指標として Selle の基準¹³⁾がある。1,500 ml/日以上以上の排液が5日以上続く場合、2週間の保存的治療

で排液量の減少が見られない場合、栄養・水分や電解質の著明な障害や免疫能の低下を認める場合を手術適応とされている。本例は腫瘍が巨大であり縦隔側横隔膜、食道近傍で手術操作を行っており、初回手術時に術後乳糜漏予防目的で、腫瘍剥離面にヒトフィブリノゲン組織接着シートを貼付した。しかし、術翌日から乳糜胸を認めた。絶食・高カロリー輸液による保存的治療を行ったが、約1,000 ml/dayにおよぶ乳糜漏出が持続したため、術後7日目に手術を選択した。乳糜漏手術にアイス摂取が有効との報告が散見される¹⁴⁾。本例も胸壁のリンパ管同定が可能となりクリップすることができた。しかし、腫瘍剥離範囲が大きい場合はアイス摂取により必ずしも毛細リンパ管からの乳糜漏までは同定困難であったことを経験した。乳糜量を減少しえたことで、胸膜癒着療法を追加することで治療が可能となった。このように、腫瘍床の広い腫瘍切除後の胸壁リンパ漏では、術前アイス摂取を行っても微細なリンパ管からの乳糜同定が困難となることがあるため、段階的かつ複合的な治療計画を立てる必要がある。

本例では胸壁からの乳糜漏出を認めた。腫瘍が巨大で右胸腔下端を占めて存在し縦隔面を圧迫して存在していた。そのため、胸管の圧迫によりリンパ流側副路として胸壁へのリンパ網が発達し胸壁からの乳糜漏を来し、さらに胸管遮断でも胸壁縦隔面から乳糜漏出が持続したものと考える。一方で、特発性乳糜胸に対する胸管結紮により側副路からの漏出が増悪したと考えられる報告¹⁵⁾もある。本例は横隔膜上で食道近傍の胸膜切開、腫瘍剥離操作を要したため、初回手術時に胸管損傷あるいは分枝損傷の可能性を考え胸管のクリップを行ったが、胸管損傷の可能性が低い胸壁リンパ漏の場合は胸管結紮は慎重に行った方がよいと考えられた。

胸腔内を占めるような巨大な腫瘍切除術後の乳糜胸を治療するにあたり、リンパ管造影検査による胸管の走行破格、狭窄の有無、他リンパ網の発達の有無を確認し、手術では胸壁、縦隔面にわたる広範囲に対する漏出閉鎖の操作を考慮する必要がある。

結 語

右側胸壁に発生した巨大神経鞘腫術後に胸壁から乳糜胸を来した1例を経験した。右胸腔横隔膜近傍の巨大な腫瘍切除においては術後乳糜胸を念頭に置いた術野の注意深い観察が必要である。

利 益 相 反

本論文について申告する利益相反はない。

文 献

1. 六鹿雅登, 玉木修治, 横山幸房, 横手 淳, 中島正彌. 胸部大動脈瘤術後乳糜胸に対するオクトレオチドの使用経験. 日心臓血管外会誌 2005; **34**: 48-50.
2. 川角佑太, 市川靖久, 上野陽史, 福本紘一, 内山美佳, 森正一. 鼠径リンパ節穿刺リンパ管造影にて治癒した肺癌術後乳糜胸の一例. 日呼外会誌 2019; **33**: 525-31.
3. 大和 靖, 小池輝明, 吉谷克雄, 宮内善広. 両側乳び胸を併発した縦隔リンパ管腫の1切除例. 日呼外会誌 2006; **20**: 923-7.
4. 尾高 真, 柴崎隆正, 浅野久敏, 丸島秀樹, 山下 誠, 森川利昭. 胸腺腫術後に発症した乳び胸の1例. 慈恵医大誌 2015; **130**: 47-51.
5. Stefanidis C, el Nakadi I, Huynh CH, de Francquen P, Van Gossum A. Benign thoracic schwannoma and post-operative chylothorax: case report and review of the literature. Acta Chir Belg 1994; **94**: 105-9.
6. Brontons ML, Bolca C, Frechette E, Deslauriers J. Anatomy and physiology of the thoracic lymphatic system. Thorac Surg Clin 2012; **22**: 139-53.
7. 高橋一臣, 水野 豊, 原田ジェームス統, 成田知宏, 阿佐美健吾, 鳩山恵一郎. Etilefrine 投与が有用であった食道癌術後乳糜胸の1例. 日臨外会誌 2016; **77**: 804-8.
8. 杉村裕志, 山崎郁郎, 伊藤有祐, 叢 岳, 野守裕明, 武士昭彦. 経静脈的胸管塞栓術により治療した難治性乳び胸の一例. 日呼外会誌 2017; **31**: 122-6.
9. 上野陽史, 中島 潔, 門松由佳, 岡阪敏樹, 森 正一. 治療に難渋した成人特発性乳糜胸の一例. 日呼外会誌 2015; **29**: 155-9.
10. 鈴木健司, 佐藤達夫, 岡田守人. 乳び胸のマネジメント. PROG MED 2014; **34**: 555-61.
11. 都甲さゆり, 井上真帆, 文野誠久, 坂井宏平, 東 真弓, 青井重善, 他. 縦隔悪性腫瘍術後乳び胸に対して胸腔鏡下ポリグリコール酸シート併用組織接着剤被覆が有効であった1幼児例. 日小外会誌 2018; **54**: 111-5.
12. 佐々木正人, 平井誠也, 川邊正和, 井隼彰夫, 田中國義. 術後乳糜胸に対する胸腔鏡下手術の4例. 日呼外会誌 2005; **19**: 562-5.

13. Selle JG, Snyder WH 3rd, Schreiber JT. Chylothorax: indications for surgery. *Ann Surg* 1973; **177**: 245-9.
14. 森 祐輔, 橘 正剛, 横井忠郎, 佐藤伸也, 進藤久和, 高橋 広, 他. 甲状腺悪性腫瘍における頸部郭清術後乳糜漏に対する対策と管理. *内分泌甲状腺外会誌* 2017; **34**: 244-250.
15. 野田 剛, 栗原英明, 秋葉直志, 山崎洋次. 持続的陽圧呼吸が有用であった特発性乳び胸の 1 例. *日呼吸会誌* 1999; **37**: 130-4.

A case of chylothorax after resection of right chest wall giant schwannoma

*Yo Tsukamoto^{*1}, Makoto Odaka^{*1}, Takeo Nakada^{*1}
Mitsuo Yabe^{*1}, Tadashi Akiba^{*1}, Takashi Ohtsuka^{*2}*

^{*1}Department of Surgery, Jikei University Kashiwa Hospital

^{*2}Department of Surgery, Division of Thoracic Surgery, Jikei University School of Medicine

We herein report the case of a patient with chylothorax following the resection of a giant schwannoma of the right chest wall. A 66-year-old female with abnormal chest radiograph findings on medical examination was referred to our hospital. Chest computed tomography revealed a 12-cm mass in the right chest cavity. On magnetic resonance imaging, the mass exhibited a high signal intensity in T1-weighted images and low signal intensity in T2-weighted images, consistent with a cystic tumor. The patient underwent open thoracotomy and tumor resection. The pathological diagnosis was schwannoma. Chylous pleural effusion was observed in the chest tube after a meal on the day after surgery. Despite conservative therapy with drainage and fasting, the amount of daily drainage was persistently more than 1000 mL. On postoperative day 7, she underwent thoracoscopic surgery. There was no damage to the thoracic duct, but chyle leak from the chest wall was observed. The thoracic duct and site of the chyle leak were closed with clipping, which led to a reduction in the chylous drainage to 200 mL/day. The pleural effusion completely resolved following pleurodesis with 10KE of OK432, 14 days after the re-operation.