症例報告

卵巣嚢腫茎捻転との鑑別が困難であった成人腸間膜リンパ管腫を 腹腔鏡手術で行えた1症例

滋賀医科大学産科学婦人科学教室

脇ノ上史朗、山中章義、高橋顕雅、郭 翔志、高島明子、
清水良彦、樽本祥子、中川哲也、高橋健太郎、村上 節

A case of adult mesenteric lymphangioma discovered during laparoscopic surgery performed for suspected ovarian torsion

Shiro Wakinoue, Akiyoshi Yamanaka, Akimasa Takahashi, Shoji Kaku, Akiko Takashima,
Yoshihiko Shimizu, Yoshiko Tarumoto, Tetsuya Nakagawa, Kentaro Takahashi,
Takashi Murakami

Department of Obstetrics and Gynecology, Shiga University of Medical Science

Abstract

Ovarian torsion causes acute abdomen, and it is increasingly being treated with laparoscopic surgery, even in emergencies. Herein, we report a case of a 27-year-old woman who underwent laparoscopic surgery for excision of mesenteric lymphangioma, which could not be easily differentiated from ovarian torsion. Three days before her visit to our department, she visited her former physician because of lower abdominal pain and was diagnosed with an ovarian cyst. She then visited our department because of worsening lower abdominal pain. Ultrasonography showed a multilocular cystic tumor (9 cm in diameter), and tenderness was noted over the pelvis. Therefore, ovarian torsion was suspected, and emergency laparoscopic surgery was performed. We detected a smooth surface tumor in the pelvis; the tumor originated from the sigmoid colon mesentery. No abnormal findings were observed in the uterus and bilateral adnexa. The tumor was excised; multilocular cysts were recognized on the cut surface of the excised specimen, and serous fluid in the cyst was observed. A diagnosis of mesenteric lymphangioma was made via histopathological examination.

Lymphangiomas commonly develop in the neck and armpits in children and rarely develop in the mesentery in adults. Although laparotomy was previously the treatment of choice for these tumors, laparoscopic surgery is being increasingly used for treatment in recent years. It is important to differentiate mesenteric lymphangiomas from ovarian cysts, and concurrent use of computed tomography (CT), magnetic resonance imaging (MRI), and other imaging modalities can help increase the rate of diagnosis. However, lymphangiomas are sometimes only detected during surgery, and it is important to work closely with other hospital departments in such cases.

Key Words: Mesenteric lymphangioma, ovarian torsion, laparoscopic surgery

緒 言

リンパ管腫は小児の頭頸部や腋窩に好発する疾患であり、成人の腸間膜に発生することは稀である。卵巣嚢腫や脾臓由来の嚢胞性病変などの疾患と鑑別を要するが術前診断が困難なことも多い。

今回我々は、卵巣嚢腫茎捻転との鑑別が困難であった成人腸間膜リンパ管腫を経験し、腹腔鏡手術にて摘出したので報告する。

症 例

【患者】27歳、未経妊。

【主訴】 下腹部痛

【既往歴】 特記すべきことなし

【家族歴】 特記すべきことなし

【生活歴】 喫煙20本/日、機会飲酒

【現病歴】

下腹部痛を主訴に近医受診し卵巣嚢腫を指摘された。鎮痛剤投与により痛みは軽減したが、3日後に再度下腹部痛出現し増強傾向にあるため当科外来を受診した。下腹部正中に可動性不良な小児頭大の腫瘤を触知し圧痛を認めたが、筋性防御や反跳痛は認めなかった。内診上子宮は前傾前屈、鶏卵大であり可動性良好、膀胱子宮窩に弾性軟な腫瘤を触知した。経膈超音波検査にて骨盤内に95.2×71.7mmの隔壁を有する多房性嚢胞性腫瘤を認めたが、明らかな充実性部分や乳頭状増殖などの所見はなく良性卵巣腫瘍を疑った(図1)。右側に正常卵巣を確認し、ダグラス窩に腹水を少量認めた。血液検査所見では炎症反応の上昇を認めた。卵巣嚢腫茎捻転を疑い緊急手術目的に当科入院となった。

図1 経膈超音波検査所見
95.2×71.7mmの多房性嚢胞性腫瘤を認める。

【入院時身体所見】

身長161.0cm 体重54.0kg BMI 20.8 血圧106/67mmHg 脈拍 86回/分 体温 37.2℃

【血液検査所見】

WBC 14100 / μ l RBC 425万/ μ l Hb 13.3g/dl Ht 39.6% PLT 20.9万/ μ l CRP 21.3mg/dl CEA 0.9ng/ml CA19-9 6U/ml CA125 14U/ml

【入院後経過】

全身麻酔下に腹腔鏡手術を開始した。臍下からダイレクト法にて12mmトロカールを挿入し、引き続き左右下腹部に5mmトロカールを挿入し気腹法(気腹圧10mmHg)で行った。骨盤内を占拠する10cmほどの腫瘤を認め、腹膜・大網との癒着が認められた(図2)。上腹部には異常所見

図2 骨盤内を占拠する10cmほどの表面平滑な腫瘤を認める

を認めなかった。腫瘤表面は平滑であったが可動性は周囲組織との癒着のため不良であり、この時点では内性器を確認することは困難であった。癒着剥離をすすめている際、嚢胞壁の一部が破たんし内容液が漏出したため、吸引管にて内容液を吸引し嚢胞を縮小させた。内容液の性状は漿液性であったが、色調はやや混濁した黄緑色であり、腫瘤に感染が生じたものと思われた。その後骨盤内を観察すると子宮と両側付属器は正常であり、腫瘤はS状結腸腸間膜から発生していることが確認された(図3)。外科医の応援を頼み、下腹部正中に4cmの横切開を加え創部にウンドリトラクターを装着し、腫瘤をS状結腸とともに体外へ引き出した(図4)。直腸から空気を入れ腫瘤と腸管との間に交通性がないことを確認し、腫瘤のみ摘出した。腸軸捻転等の腸管異常は認めなかった。腫瘤は多房性であり一部壁肥厚が認められたが、充実部分は認められなかった(図5)。嚢胞壁の一部を術中迅速に提出したが悪性を示唆する所見は認めず、拡張したリンパ管を伴う組織と炎症性肉芽組織が形成されていた。主病変の口側にも約2cmの同様な嚢胞性病変を認め切除した。手術時間は2時間45分、出血量は80mlであり術中合併症は認めなかった。病理組織診断では、嚢胞壁内にはリンパ球や好中球・好酸球が浸潤し、毛細血管腔も増生していた。また脂質を含んだ泡沫細胞や嚢胞壁内の平滑筋束が散見された。嚢胞内皮はリンパ管内皮細胞マーカーであるD2-40免疫染色陽性でありリンパ管の増生が認められ、嚢胞性リンパ管腫と診断した(図6)。術後下腹部痛は軽快し炎症反応も低下した。経過良好にて術後5日目に退院となった。現在術後2年が経過したが再発は認めていない。

図3 腫瘍はS状結腸腸間膜から発生している

A H.E.染色×40

図4 体外へ引きだされたS状結腸および腫瘍

B D2-40免疫染色×100

図6 病理組織学的所見

考 察

リンパ管腫は小児の頭頸部や腋窩に好発する疾患であり、その約90%は3歳までに診断され成人で診断されることは少ないとされている¹⁾。腹腔内に発生することは比較的まれでありリンパ管腫全体の1-9%ほどである¹⁻³⁾。腹部に発生するリンパ管腫のうち腸間膜由来が約70%であり、そのうち小腸間膜発生が70.5%、結腸間膜発生が26.2%と報告されている⁴⁾。リンパ管腫はリンパ管の形成異常であるが、血管病変を腫瘍と奇形に分類したISSVA (International Society for the Study of Vascular Anomalies) 分類ではリンパ奇形に分類される。その成因はさまざまであるが先天的要因と後天的要因に大別される。先天的要因として胎生期のリンパ管組織と静脈系との連絡が欠如したとする説⁵⁾や迷入リンパ管などの説⁶⁾がある。後天的な要因としては外傷や外科手術、放射線治療などによる炎症がリンパ管の閉塞、うっ滞などを生じ成因となると考えられている⁷⁻⁸⁾。成人で診

図5 摘出リンパ管腫マクロ像
大小不同の多房性嚢胞を認めたが充実部分は認めなかった。

断される場合は後天的に発生したケースと先天的に生じていたケースが考えられる。本症例では外科手術や放射線治療などの既往はなく、以前より腸間膜嚢腫が存在していたと思われる。

ここ最近10年間に報告された本邦の成人腸間膜リンパ管腫を自験例も含めて17例集計した⁸⁻²³⁾(表1)。男女比は4:13と女性が多く、主訴は腹痛が47.1%と最も多かったが長期間にわたり無症状の場合もあり特異的な症状は認めなかった。なかには腸閉塞や腸軸捻転を合併し緊急手術を要したケースも散見された^{9-10,22)}。本症例では嚢胞内容液の性状や嚢胞と周囲組織の癒着の状態から、リンパ管腫に感染が生じ強い炎症を引きおこし急性腹症に至ったと推察される。腸間膜リンパ管腫の確定診断を術前に行うのは困難であるが、各種画像診断法の発達により術前に診断がなされた報告²⁴⁾も散見される。画像診断はCT、MRI、超音波検査などが主流であり、なかでも簡便に行える超音波検査はよく用いられる。超音波検査では単房性もしくは隔壁を有する多房性の嚢胞性腫瘍として描出されるが、そのみでは腸管リンパ管腫と診断することは困難であり臍臓や卵巣由来の腫瘍との鑑別が必要である。経腔超音波にて卵巣が同定できれば卵巣嚢腫は除外できるが骨盤内を占拠するような大きな腫瘍の場合は正常卵巣同定が困難な場合もある。今回の検討でも女性13例中4例が

術前に婦人科疾患を疑われた。CT、MRI等を併用することにより解剖学的位置関係が明確になれば診断の一助になると思われ、積極的に行われるべきである。嚢腫の内容液は乳び、漿液性、血性とさまざまであり性状から疾患を推定することは困難であると思われる。今回我々は骨盤内の嚢胞性腫瘍を卵巣腫瘍と断定してしまい、超音波検査以外の画像診断を行わなかった。卵巣腫瘍以外の疾患も考慮し、CT、MRI等を撮影していれば術前診断が可能だったかもしれないと反省すべき点である。

腸管リンパ管腫は周囲組織へ浸潤し増生することがあるため、その治療は外科的切除が基本であるが切除困難例にはブレオマイシンやOK-432等を用いた硬化療法^{25,26)}の報告もある。従来腫瘍切除には開腹手術が選択されることが多かったが、近年腹腔鏡手術による治療例の報告が増えている。腸管合併切除が必要な場合もあるが、リンパ管腫は良性疾患であり低侵襲である腹腔鏡手術はよい適応だと思われるが、リンパ管腫と鑑別すべき悪性疾患としては腸間膜嚢胞癌²⁷⁾があるがその頻度は極めてまれである。予後は良好な疾患ではあるが不完全切除に終わった場合は再発する危険がある²⁸⁾。腫瘍開窓術も行われることがあるが、嚢胞内容液を吸引するだけではなく、再発予防の観点からも嚢腫の完全切除が望まれる。

表1

報告者	年齢	性別	主訴	術前診断	術式	腸管合併切除
中村 ⁹⁾	27	男	腹痛	腹部腫瘍、小腸捻転	開腹	あり
草間 ¹⁰⁾	20	男	腹痛	腸間膜嚢胞、中腸軸捻転	腹腔鏡	あり
尾崎 ¹¹⁾	37	男	腹痛	腸間膜嚢胞	腹腔鏡	あり
高崎 ¹²⁾	20	男	腹痛	腹部腫瘍	開腹	あり
中村 ¹³⁾	64	女	腹部膨満感	腸間膜嚢腫	開腹	あり
森田 ¹⁴⁾	19	女	腹痛	卵管嚢腫 or 傍卵巣嚢腫	開腹	あり
岡本 ¹⁵⁾	67	女	心窩部痛	卵巣嚢腫	開腹	あり
西澤 ¹⁶⁾	48	女	腹痛	後腹膜リンパ管腫	開腹	あり
田中 ¹⁷⁾	49	女	腹部膨満感	卵巣嚢腫	開腹	あり
枝園 ¹⁸⁾	71	女	腹部違和感	小腸間膜腫瘍	開腹	あり
竹束 ¹⁹⁾	37	女	腹部違和感	腸間膜リンパ管腫	腹腔鏡	なし
松原 ⁸⁾	48	女	無症状	リンパ管腫	開腹	あり
張 ²⁰⁾	29	女	無症状	腸間膜リンパ管腫	開腹	あり
藤川 ²¹⁾	20	女	腹痛	腸間膜嚢胞	開腹	あり
牧野 ²²⁾	83	女	嘔吐	腸間膜嚢胞、小腸軸捻転	開腹	あり
森嶋 ²³⁾	50	女	無症状	後腹膜リンパ管腫	開腹	なし
自験例	27	女	腹痛	卵巣嚢腫	腹腔鏡	なし

結 語

卵巣嚢腫茎捻転との鑑別が困難であった成人腸間膜リンパ管腫の1例を報告した。成人腸間膜リンパ管腫は稀な疾患であるが、卵巣嚢腫との類似点も多く婦人科医が初期対応することもあるかと思われる。本邦における腸間膜リンパ管腫の報告の多くは外科医からのものであるが我々婦人科医も知っておくべき疾患と思われた。骨盤内に嚢胞性腫瘍を認める急性腹症の症例では卵巣嚢腫茎捻転以外の疾患も念頭に置きCT、MRI等の画像診断を積極的に行うことが重要である。近年の腹腔鏡手術の発展に伴い腹部の良性疾患は緊急時でも腹腔鏡手術が選択されることが増えている。日頃から外科医、泌尿器科医等の他科との連携を密とし、術中予期せぬ事態に遭遇しても冷静に対処することが必要である。

本論文の要旨は第51回日本産科婦人科内視鏡学会において発表した。

参考文献

- 1) Jun Chul Chung, Ok Pyung Song.: Cystic lymphangioma of the jejuna mesentery presenting with acute abdomen in adult. Can J Surg 2009; 52: 286-288
- 2) Jimmy K Limdi, et al.: Cystic Lymphangioma of the Mesocolon. J Gastrointest Surg 2010; 14: 1459-1461
- 3) Imtiaz Wani.: Mesenteric Lymphangioma in Adult. Dig Dis Sci 2009; 54: 2758-2762
- 4) Tsukada H, et al.: Giant cystic lymphangioma of the small bowel mesentery: Report of case. Surg Today 2002; 32: 734-737
- 5) Godart S.: Embryological significance of lymphangioma. Arch Dis Child 1966; 41: 204-206
- 6) Ford JR.: Mesenteric cysts. Review of the literature with report of an unusual case. Am J Surg 1960; 99: 878-884
- 7) Gleason TJ, et al.: Traumatic cervical cystic lymphangioma in an adult. Ann Otol Rhino 1993; 102: 564-566
- 8) 松原健太郎、他：成人小腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外会誌 2009; 70: 1213-1216
- 9) 中村謙一、他：小腸捻転によるイレウスで発症した成人小腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 2011; 72: 2956-2959
- 10) 草間 啓、他：腹腔鏡下手術を施行した腸間膜リンパ管腫合併中腸軸捻転を伴う成人腸回転異常症の1例. 日消外会誌 2011; 44: 738-744
- 11) 尾崎邦博、他：腹腔鏡補助下に切除した成人小腸腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外会誌 2011; 72: 1569-1572
- 12) 中村浩之、他：病理組織学的診断に苦慮した腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 2009; 71: 1001-1004
- 13) 高崎盛生、高木秀和、庭野元孝：急性腹症で発症した腸間膜リンパ管腫の1例. 倉敷中央病院年報 2006; 68: 225-228
- 14) 森田 亮、他：炎症反応が高値を示した骨盤内腫瘍の1例. 日産婦神奈川地方部会誌 2011; 48: 18-21
- 15) 岡本経子、他：腸閉塞を呈した成人小腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外会誌 2011; 72: 1038-1041
- 16) 西澤竜矢、他：感染を合併した成人腸間膜リンパ管腫の一切除例. 市立札幌病院医誌 2011; 70: 221-224
- 17) 田中優作、他：術前に卵巣腫瘍と診断した腸間膜リンパ管腫の1例. 臨床外科 2011; 66: 247-250
- 18) 枝園和彦、他：FDG集積亢進を認めた成人小腸間膜リンパ管腫の1切除例. 日臨外医会誌 2010; 71: 1056-1060
- 19) 竹束正二郎、他：妊娠出産後に発症し腹腔鏡下に摘出された腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 2009; 71: 2158-2161
- 20) 張 文誠、宮坂芳明、三井照夫：成人巨大腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 2008; 69: 2114-2118
- 21) 藤川幸一、他：成人腸間膜リンパ管腫の1切除例. 日消外会誌 2007; 40: 1706-1710
- 22) 牧野 勇、他：小腸捻転をきたした小腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 2006; 67: 1418-1422
- 23) 森嶋 計、他：小腸腸間膜嚢胞性リンパ管腫の1例. 日臨外会誌 2007; 68: 468-471
- 24) 三村卓司、他：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. 臨床放射線 1995; 40: 281-284
- 25) 原 真一、難波貞夫、宮崎洋史：腹腔鏡下に安全に硬化療法により治癒せしめた腸間膜嚢腫の1例. 日小児外会誌 1994; 30: 649
- 26) 徳原克治、他：巨大腸間膜リンパ管腫に対し腹腔鏡補助下嚢腫全摘術と硬化療法を併用した1例. 日小児外会誌 2003; 39: 970-975
- 27) 原川伊寿、他：腸間膜嚢胞腺癌の1例. 日消外会誌 1987; 20: 2397-2400
- 28) 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 1995; 56: 2726-2730