●〈症例〉

十二指腸リンパ管腫の4例

光永 真人¹⁾ 秋山純一 大塚隆文 望月雅恵
 小飯塚仁彦 田代 淳 二上敏樹 藤沢智雄
 吉永 秀哉 村岡 亮 正田良介 大和 滋
 上村 直美 斉藤 澄²⁾

¹⁾国立国際医療センター／消化器科, ²⁾同／病理

〔Key Words〕 十二指腸リンパ管腫

はじめに

リンパ管腫は、リンパ管の増殖からなる非上皮性良性腫瘍である。消化管、特に十二指腸原発の報告は稀であり、1966年から2001年までのMedlineおよび1983年から2001年までの医中誌で、リンパ管腫と十二指腸の条件で検索し、詳細を評価し得た報告例は45例^{1,2)}にすぎない。本邦では1965年橋本ら³⁾によって初めて報告されている。今回我々は、上部消化管内視鏡検査にて診断し得た十二指腸リンパ管腫の4症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

症例のまとめをTable 1に示す。年齢は36歳から67歳で、4例のうち3例が女性であった。主訴は2例が心窩部痛、2例には特になかった。また、1例に十二指腸潰瘍の既往があった。いずれの症例にも血液検査上特記すべき異常は認めなかった。全例で十二指腸下行部に単発で、大きさが7 mmから15 mm大のなだらかな隆起性病変を認めた。表面は平滑であり、一部に顆粒状の白色斑を伴った黄白色の色調を呈していた(Color 1, 2)。生検時に乳糜の流出を認めた例もあった。病理組織学的には粘膜下に拡張したリンパ管の集簇とその管腔内にはリンパ液の貯留を認め、海綿状十二指腸リンパ管腫と診断した(Fig. 1)。診断後最長で約4年の経過観察をしているが、悪性化および巨大化した症例は現在のところない。

考 察

十二指腸リンパ管腫は非上皮性の良性腫瘍であり、病因は明らかではないが、先天的なリンパ管の形成異常あるいは後天的なリンパ管の通過障害によるものと考えられている。臨床症状として腹痛や血便などの報告もあるが、特異的なものはなく、最近では内視鏡検査にて偶然発見される例が増加している。

これまでの報告例45例に自験例4例を加えた49例に

Fig. 1 Histological examination revealed normal epithelium and dilated lymphatic vessels filled with lymphatic fluid in the submucosa. (HE stain).

ついて検討した(Table 2)。

年齢は24歳から82歳までで、男女比は1 : 2と女性に多かった。症状は22%に腹痛、10%に血便を認めたが特異的なものは認められなかった。一方で、閉塞性黄疸や急性膵炎の原因となった稀な報告例^{4,5)}もみられた。大きさは10 mm程度のものから手拳大までで、存在部位は十二指腸下行部59%、水平部16%、球部14%、上行部2%であった。肉眼的特徴として、単発で黄色、表面には顆粒状の白色斑を伴う平滑な粘膜下腫瘍の形態を呈し、黄色腫と診断されている例も少なからずあると考えられた。病理組織学的には、粘膜に異型性を認めず、粘膜下に拡張したリンパ管の集簇と管腔内のリンパ液の貯留を認める。Wagner⁶⁾はリンパ管腫を管腔の大きさによって海綿状・囊胞状・単純性と分類しているが、十二指腸原発の腫瘍では海綿状リンパ管腫の報告例が35%、囊胞状が4%で、残りは不明であった。治療については大きさや症状などにより異なるが、腫瘍からの出血や消化管狭窄症状等を呈し開腹手術となった症例が38%、内視鏡的切除術が18%、無治療が14%、その他不明が30%であった。切除後の再発例はあるものの悪性化の報告はなく、小さな腫瘍では注意深い経過観察で十分と考えられた。

おわりに

十二指腸リンパ管腫は比較的稀な腫瘍である。特異的な症状はなく、大きさも様々であるが、中には出血や狭窄症状を呈するものも報告されている。今後症例の集積により、本症例の自然史や正確な頻度を改めて検討する必要があると考えられた。

Table 1 4 cases of lymphangioma of the duodenum.

症例	年齢	性別	主訴	部位	大きさ	組織型
1	36歳	女性	なし	下行部	7 mm	海綿状
2	39歳	男性	心窩部痛	下行部	10 mm	海綿状
3	61歳	女性	なし	下行部	7 mm	海綿状
4	67歳	女性	心窩部痛	下行部	15 mm	海綿状

Table 2 Summary of the reported cases of lymphangioma of the duodenum.

年齢 24〜82歳		組織学的所見	
男女比 1 : 2 女性に多い		海綿状	17例 (35%)
		嚢胞状	2例 (4%)
		その他	30例 (61%)
症状		治療	
腹痛	21例 (22%)	内視鏡的切除	9例 (18%)
血便	5例 (10%)	PRD	14例 (28%)
なし	10例 (20%)	PD	5例 (10%)
その他	13例 (27%)	なし	7例 (14%)
大きさ 1cm 〜手拳大		不明	14例 (30%)
部位			
球部	7例 (14%)		
下行部	29例 (59%)		
水平部	8例 (16%)		
上行部	1例 (2%)		
不明	4例 (9%)		

(PRD, partial resection of duodenum; PD, pancreaticoduodenectomy.)

文 献

- Ikura Y, Hashimoto T, Takamine Y et al : Lymphangioma of the duodenum : report of a case. Surg Today 24 : 160—163, 1994.
- 西尾秀樹, 長谷川洋, 松本隆利他 : 十二指腸リンパ管腫の1例. 日消外会誌, 26 : 2050—2054, 1993.
- 橋本義雄, 阿部稔雄 : 十二指腸臍頭部リンパ管腫. 外科治療,

12 : 203—210, 1965.

- Artaza T, Potenciano JM, Legaz M et al : Lymphangioma of Vater's ampulla : a rare cause of obstructive jaundice. Endoscopic therapy. Scand J Gastroenterol 30 : 804—806, 1995.
- Sriram PV, Weise C, Seitz U et al : Lymphangioma of the major duodenal papilla presenting as acute pancreatitis : treatment by endoscopic snare papillectomy. Gastrointest Endosc 51 : 733—736, 2000.
- Wagner G : Lymphangioma. Arch Klin Chir 20 : 641, 1877.

Four cases of lymphangioma of the duodenum

Makoto Mitsunaga ¹⁾	Jyunichi Akiyama
Takafumi Otuka	Masae Mochiduki
Hitohiko Koizuka	Jun Tashiro
Toshiki Nikami	Tomoo Fujisawa
Hideya Yoshinaga	Ryo Muraoka
Ryosuke Shoda	Shigeru Yamato
Naomi Uemura	Kiyoshi Saitou ²⁾

Four cases of lymphangioma of the duodenum were reported. All of the tumors were found in the second portion of the duodenum with endoscopy. They were yellowish elevated lesion with smooth surface and were 7 to 15 mm in diameter. Their appearances were quite similar to xanthoma. The histological examination revealed normal epithelium and dilated lymphatic vessels filled with lymphatic fluid in the submucosa. Lymphangioma of the duodenum is benign tumor, however, there are only 45 reports about them. The exact incidence and natural history of lymphangioma of the duodenum should be elucidated.

¹⁾Division of Gastroenterology, ²⁾Division of Pathology, International Medical Center of Japan.

〈カラーは6頁に掲載〉