症 例

脂肪異栄養症を併発した大網膜脂肪腫症の根治例

浜松医科大学第1外科（主任：吉村敬三教授）

馬 場 國 男 原 田 幸 雄

宇 野 武 治 吉 村 敬 三

部分的脂肪異栄養症の病態を呈する大網の巨大な脂肪性腫瘍を外科的に根治しえたので検討した。

4歳男児。出産、乳児期には問題なし。1歳半頃より発育が遅延しはじめ、次第に食事量の減少と低栄養状態が進行し、四肢の著しいいそうがみられたので、諸検査を施行した。CTで腹腔内に脂肪様組織の異常集積像が認められたので開腹、大網の脂肪性腫瘍と判明した。これを全摘除したところ、重量1.6kgで体重の14.3%を占め、病理組織では良性の脂肪腫の集合したものであった。術後は食餌摂取量の増加もあり、短期間に急速な成長がみられ、皮下脂肪も発達、術後3年再発なく順調に経過している。

大網のこのような腫瘍の報告は本邦第1例目と考えられ、大網膜全体に百個以上の脂肪腫が集合して発育していたことより、大網膜脂肪腫症と名付けた。

索引用語：大網腫瘍，脂肪腫症，部分的脂肪異栄養症

はじめに

大網膜に充実性腫瘍が発生することは、きわめて稀である。今回経験した症例は、発育障害を伴う巨大な大網膜原発の脂肪腫症の小児で、これを外科的に根治せしめた。本邦においては、かかる症例の報告をみていないので紹介し、若干の文献的考察を行なった。

症 例

昭和52年10月生れの男児、家族歴に特記すべきことはない。妊娠、出産、新生児、乳児期にも特に問題なく、1歳半頃までは身体発育は標準的で異常な点はなかった。その後身体発育が遅延しはじめ、3歳頃よりは体重増加もほとんど停止した状態となる。2歳9カ月で、体重9.5kg、身長85.7cm、3歳10カ月ではそれぞれ10.4kg、91cm。

3歳7カ月の時、左外単径ヘルニアの発生をみ、3歳10カ月の56年7月当科にて同根治術が施行されている。この時、体格は小、栄養は貧で、手術記録では皮下脂肪が全くなく、ヘルニアの内容は認めなかったとある。

その後、小児科で発育遅延の原因について、内分泌検査を中心に精査がすすめられた。貧血はなく、生化学検査ではLDH、GOTの軽度の上昇のほかはほぼ正常、脂質代謝、各種内分泌機能検査もすべて正常範囲内、消化吸收試験も正常、頭部CT、脳波等にも異常所

図1 術前：四肢の著しいいそうと腹部全体の膨隆が認められる。

見はなく、小児科的には発育栄養障害の誘因と考えられるような所見は見出せなかった。尚、知的発育、精神発達に遅延は認めない。

56年8月の腹部X線写真で、腸管ガス像が背側上方に異常に集中している所見(図2)が認められたので、

図2 腹部単純X線像(側面)：腹腔内臓器の背側上方への偏位と、その前面に透亮部分が広がっている。

この方面への検索をすすめた。消化管透視(注腸造影)では、直腸、S状結腸が正中背方へ強度に圧排され、その口側結腸も、前方側方よりの圧排で集中している。腎盂尿管造影では、腎の頭側への挙上、尿管の正中背方への圧排、膀胱の下方への圧排像がみられる。腹部CTでは、肝下面より骨盤腔に至る腹腔の前方及び側方を広範囲に占拠する塊状陰影が認められる。肝を除く腹腔内臓器はこのために、脊柱に向かって異常に集束されている。この陰影のCTナンバーは-106で脂肪濃度を示し、隔壁が形成され、数カ所には石灰化部分が認められる(図3)。腹壁皮下脂肪層は認められない。腹部大動脈造影では、腹腔動脈ないし上腸間膜動脈領域より1本の比較的太い異常動脈がこの組織に流入している。サーモグラフィでは、腹部が全体に低温域となっている。腹壁からの穿刺吸引細胞診では、脂肪様組織がひけ、細胞異型度はclass IIであった。

以上より、肝下面より骨盤腔にいたる腹腔内の異常な脂肪組織の発育集積と術前診断し、発育栄養障害との関連性は不明のまま、56年11月手術を施行した。

手術時は4歳1ヵ月、身長93cm、体重11.2kg、老人様逆三角形顔貌を呈し、全身の皮下脂肪はほとんど認められず、四肢、腹壁のふいそうが著明である(図1)。胸部は、心肺に異常なく、腹部は全体に膨隆し、打診

図3 腹部CT：腹腔全体を隔壁形成した脂肪様組織が占拠、一部に石灰化部分あり。腹腔内臓器は脊柱に向かって圧排されている。

にて濁音を呈し、肝、脾は触れず、腹水所見もない。

手術は、全麻下に臍上約2cmに横切開を置いたが、皮下脂肪組織は全くなり、腹膜を開くと脂肪塊が腹腔外に溢出してきた(図4)。腹水はなく、鼠径ヘルニア手術瘢痕部以外に癒着はない。腫瘍は大網膜及び胃結腸靱帯に発生し、肝下面から骨盤腔にいたる腹腔内全体に他臓器を圧排して広がり、クルミ大程度に分葉し、ブドウ房状に構成された、比較的硬い脂肪腫瘍の集合で、鮮黄色、数カ所には白色硬化部分も認められた。術中迅速病理診断では脂肪腫、石灰化線維化部分にも悪性所見は認めず、胃大網動脈よりかなり太い栄養血管が1本この組織に流入していたので、これを結紮切断、これらの組織を一塊として比較的容易に全摘除しえた。摘出標本は35×25×8cm、重量は1.6kgであった(図5)。腸間膜リンパ節のそら豆大までのるいとした腫脹を認め、腹壁、腸間膜などに脂肪組織が全く存在しなかったが、腹腔内臓器に特別の異常は見あたらなかった。

病理組織診断は、大部分は成熟した脂肪細胞よりなる脂肪組織で、一部に石灰化を伴う線維化部分が数カ所に認められる良性の脂肪腫であった(図6)。腫大した腸間膜リンパ節には特異な所見はなかった。

図4 術中所見：胃大網動脈から太い栄養血管が出ている。

図5 摘出標本：35×25×8cm、重量は1.6kg

図6 病理組織所見：成熟した脂肪細胞よりなる脂肪腫。一部線維化部分を認める。

以上より本症例を臨床的には、大網膜の脂肪腫症(Lipomatosis of the omentum)と命名した。

術後は特別に問題なく経過し、圧排されていた腹腔内諸臓器もすべて正常位置に復し、経口摂取量も次第に増加し、術後10日目に退院した。その後の発育はきわめて良好で、飛躍的な食餌量の増加もあり、体重が術後1カ月で11.6kg、4カ月で13.6kgとなり、腫瘍摘除直後よりそれぞれ2.1kg、4.1kgの増加を示した。術前には全くみられなかった全身の皮下脂肪組織も発達し、身長も4カ月で3.5cmの伸長があり、身長、体重ともに標準範囲内に回復し、運動能力の向上も認められた。術後3年を経過した7歳時にはすでに就学し、体重も19kgとなり、身体的、精神的にも全く問題なく、元気に通学している。

考 案

大網膜原発の腫瘍の発生は稀であり、小児の大網膜の腫瘍の報告は散見されるが、充実性腫瘍は極めて稀であり、特に小児の大網膜充実性腫瘍は少ないとされてい

る¹⁾。教科書的にみると大網充実性腫瘍は、炎症性腫瘍、転移性腫瘍のほかは、脂肪腫、線維腫、平滑筋腫、肉腫、血管周囲細胞腫などが挙げられているが、臨床症状発現の例は少ないといわれる。大網の異常脂肪化による牽引症状のまれな報告²⁾のほかは、腫瘤触知以外に全身症状を呈することは少なく、特に脂肪性腫瘍によって発育障害などの臨床上の問題を惹起するような症例は考え難い。

本症例の発見動機は、腫瘤を触知することなく、発育障害、栄養障害について精査したことが発端となっており、結果的には良性腫瘍による脂肪異栄養症という、临床上は極めて特異な病態を構成していた。

文献的にみると大網発生の単純脂肪腫の報告^{3)~5)}以外には、本症例類似の症例として、1977年 Hernandez⁶⁾の報告した1例があるのみで、調べ得た限りでは本邦での報告例はなく、本症例が本邦第一例目と考えられる。

Hernandez の症例は、5歳の女児で、低栄養と食欲減退を主訴とし、病期期間は約1年である。身長は3パーセントイル、体重は10パーセントイルに属し、四肢がるいそうし、腹部のみ異常に突出した体型を示している。代謝異常は認めていない。手術所見も本症例と酷似し、摘出物重量は2.5kgと体重の約16%を占めていた。術後5カ月で4.1kgの体重増加があり、全身の皮下脂肪も発育している。病理組織についての記載はないが、摘出物の発育様態、色調等から考えて本症例と同一のものと推定できる。

本症例の場合は、4歳男児、病期期間は約2年（確定診断、手術までに時間がかかったこともある）、低栄養、食餌量減少の訴えは同様である。身長、体重ともに3パーセントイルに属し、腹部のみ膨隆し、四肢には著しいるいそうがあった。摘出物重量は1.6kgで体重の14.3%を占め、術後も4カ月で4.1kgの体重増加が短期間に同様にみられた。

Hernandez はその症例について abnormal fat collection と記述しているのみであり、組織学的検索についてはふれておらず不明であるが、単に脂肪組織の大網への集積のみで体重の10数%に及ぶ塊を形成するとは考えられない。本症例のように分葉状に発育した塊によって大網膜が置換されていた状態より、大網膜脂肪腫症と表現することが妥当と思われた。

本症例の主訴であった低栄養について考えると、臨床症状からは部分的脂肪異栄養症の病態であったことは間違いないが、腫瘍との関連については明らかでは

ない。発症から手術までには2年半位の期間が推定できるが、この間に腫瘍の増大とともに、身体的発育の停滞及び全身の皮下脂肪の消失が起っている。したがって栄養発育障害が、腫瘍の発育による直接的な影響か、または腫瘍の消化管圧排による二次的な消化器症状であるのかは判然としない。切除後に経口摂取量が増加したことは、消化管圧排が解除されたことを示すものであろうが、いずれにしろ切除後に栄養吸収、脂肪代謝が正常化して急速な体重増加が得られたことは、この腫瘍自体が低栄養の原因であったことは説明し得る。

ところで本腫瘍の発育態度をみると、腫瘍発生の一般的概念からすれば異様であり、腫瘍として促えるには少なからず疑問が存在する。すなわち本症例は一つの腫瘤の大きさがクルミ大程度のものが百数十個各々独立して被包化されたものが、あたかもぶどうの房のように発育している点である。大網膜自体が全体として腫瘍に置換され、正常な大網の組織が認められなかった点から考えても、大網の構築異常による奇形的な要素は否定できず、先天性素因の疾患が、臨床的には脂肪異栄養症に発展したものとも考えられる。

こうした観点から、小児の栄養障害特に脂肪異栄養症が疑われるものには、本症例のような疾患が種々の程度で存在するのではないかということも考える必要があろう。本症例では腹部に腫瘤を触知せず、全体として腹部所見に乏しく、診断に至るまでに代謝異常などの全身的な検索に主力が置かれたようである。しかしさかのぼって検討すると、すでに1年前の腹部単純写真で異常が指摘でき、最終的にはCT検査により診断が得られたわけであり、形態学的な検討も重要であったことが認識された。

決定的な検査としては、CTが腫瘍の局在、占拠部位及び質的な診断が可能であり有用であった^{7)~9)}。

おわりに

部分的脂肪異栄養症の病態を呈した4歳男児の巨大な大網膜脂肪腫症を摘除し、術後は栄養障害が改善し、3年以上再発なく根治せしめた。

低栄養で脂肪異栄養が疑われる小児には、このような疾患の存在も考慮すべきである。

確定診断にはCT検査が有用であった。

本論文の要旨は第44回日本臨床外科学会総会（昭和57年11月、東京）にて発表した。

文 献

- 1) 田中早苗：現代外科学大系、腹部外科概論I、木本

- 誠二監修, 1: 171—177, 中山書店, 東京, 1971.
- 2) 榎 哲夫, 白鳥常男: 現代外科学大系, 腹壁・腹膜・ヘルニア, 木本誠二監修, 1: 249—261, 中山書店, 東京, 1971.
 - 3) Giubilei, D., Cicia, S., Nardis, P., et al.: Lipoma of the omentum in a child. *Radiology*, 137: 357—358, 1980.
 - 4) Stout, A.P., Hendry, J. and Purdie, F.J.: Primary solid tumors of the great omentum. *Cancer*, 16: 231—243, 1963.
 - 5) Haller, J.O., Schneider, M., Kassner, E.G., et al.: Sonographic evaluation of mesenteric and omental masses in children. *A.J.R.*, 130: 269—274, 1978.
 - 6) Hernandez, R., Poznanski, A.K., Holt, J.F., et al.: Abnormal fat collections in the omentum and mesocolon of children. *Radiology*, 122: 193—196, 1977.
 - 7) Waligore, M.P., Stephens, D.H., Soule, E.H., et al.: Lipomatous tumors of the abdominal cavity. *A.J.R.*, 137: 539—545, 1981.
 - 8) DE Santos, L.A., Ginaldi, S. and Wallace, S.: Computed tomography in liposarcoma. *Cancer*, 47: 46—54, 1981.
 - 9) 渡辺修一, 権藤 憲, 川村明夫: 小児巨大腸間膜脂肪腫の1例, 日小児外会誌, 21: 515—519, 1985.

A CASE OF LIPOMATOSIS OF THE OMENTUM COMPLICATED BY LIPODYSTROPHY

Kunio BABA, Yukio HARADA, Takeji UNO and Keizoh YOSHIMURA

The First Department of Surgery, Hamamatsu University School of Medicine

(Director: Prof. Keizoh YOSHIMURA)

A giant adipose mass in the great omentum with a pathology of partial lipodystrophy was radically cured by surgery, and a sutyd on it was performed.

A 4-year-old boy had had no problems at delivery or in infancy. However, from about one and half years of age, his development began to slow down. A gradual decrease in meal volume, an advance in oligotrophy and marked wasting of the limb were observed. Therefore, various examinations were performed. CT revealed abnormal accumulation of adipose tissue intraperitoneally and laporotomy was applied. As a result, an adipose tumor was confirmed in the greater omentum. The adipose tumor was perfectly extirpated. It weighed 1.6kg, 14.3% of the body weight. Pathohistological examination showed a collection of benign lipomas. After the operation, with an increase in diet, rapid growth for a short period and development of subcutaneous fat were achieved. Three years after the operation, his course is satisfactory and there has been no recurrence.

This report on such a tumor in the greater omentum may be the first in this country. This tumor was named omental lipomatosis because of the occurrence of more than 100 lipomas in the greater omentum.