症 例

急性腹症で発症した小腸リンパ管腫の1例

国立東信病院外科

有 賀 浩 子 宗 像 康 博 岡 本 講 平

信州大学第1外科

市 川 英 幸 幕 内 雅 敏

症例は40歳、女性。腹部の激痛及び膨満感を主訴として来院した。顔面は苦悶状であり、腹部は柔らかいが全体に膨隆し、腹膜刺激症状を認めた。腹部X線写真では骨盤腔内にガス像は認められず、骨盤部CT撮影で子宮の前方正中線上に多房性でlow densityの腫瘍を認めた。骨盤腔内腫瘍と診断し緊急手術を施行したところ、腹腔内には回腸腸管から腸間膜にかけて12×7×5cmのブドウの房状で暗紫色の柔らかな腫瘍を認めた。腫瘍を含め回腸を30cm切除した。回腸内腔は出血を伴った部位では暗赤色の結節状隆起が全周性に存在しており、その周囲には黄色粗造な隆起が散在していた。病理組織所見で粘膜下層及び腸間膜に拡張したリンパ管組織が嚢胞状に認められ、リンパ管腔内にリンパ管内皮細胞が証明され、海綿状リンパ管腫と診断された。小腸に原発するリンパ管腫は非常に稀であるためここに報告した。

索引用語：リンパ管腫、小腸腫瘍、急性腹症

緒 言

小腸リンパ管腫は稀な疾患とされ、特異的な臨床症状に乏しく、消化管検査を施行しても発見されにくい。今回われわれは、腫瘍内出血を伴ったため急性腹症として緊急手術を施行し切除し得た小腸リンパ管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：40歳、女性。

主訴：腹痛、腹部膨満感。

家族歴：特記すべきこと無し。

既往歴：7歳、急性虫垂炎のため虫垂切除。

現病歴：平成2年1月28日の深夜、急に下腹部の激しい痛みと腹部膨満感が出現し、排便・排ガスが停止した。翌日近医を受診し、鎮痛薬の投与を受けたが症状は改善せず、1月30日には腹膜刺激症状が出現したため、急性腹症・腹膜炎の診断で当院に緊急入院となった。

入院時身体所見：血圧90/50mmHg、脈拍84/分、体温37.8℃。貧血・黄疸は無いが、痛みのため顔面は蒼白で苦悶状、皮膚は乾燥していた。腹部は全体に膨隆

し下腹部に自発痛・圧痛・腹膜刺激症状を認めた。腹部腫瘍及びダグラス窩腫瘍は触知しなかった。

入院時検査成績：白血球数15,800/mm³と増多を認めたが、肝機能・腎機能・電解質は正常範囲であった。

腹部X線写真 (Fig. 1)：腹部には小腸の拡張像・ニボー像が認められたが、骨盤腔内には腸管ガス像は認められなかった。

腹部CT像 (Fig. 2)：子宮の前方に隔壁がhigh densityで内部がlow densityな多房性の7cm大の腫瘤陰影を認めた。肝臓・胆嚢・膵臓等、他の臓器には異常所見は認められなかった。

以上の検査所見より、骨盤腔内腫瘍の診断で当日緊急手術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開で開腹したところ、腹腔内には少量の膿性腹水の貯留を認めた。回腸末端から1m50cmの口側の回腸腸管から腸間膜にかけて、12×7×5cmの腫瘍を認めた。腫瘍の性状はブドウの房状で柔らかく腫瘍内出血を伴っているため表面は暗紫色であった。更にこの腫瘍を中心に口側・肛門側の回腸腸管膜付着部にも約5～10mm大の黄色分葉状の柔らかな腫瘍を多数認めた。これらの腫瘍を含め約30cm回腸を切除し、小腸の端々吻合を行い手術を終了した。

Fig. 1 Plain abdominal X-ray film showed marked gas collection with niveau in the small intestine and little gas in the pelvic cavity.

Fig. 2 Computed tomogram showed a multilobular mass in the pelvis.

摘出標本の肉眼的所見：腫瘍は回腸腸管から腸間膜にかけて広がり(**Fig. 3**)、腸管内腔には径5~8mmの黄色粗造な隆起が散在し、出血を伴った部位では結節状隆起が塊状となり3~4cmにわたって腸管の狭窄をきたしていた(**Fig. 4**)。

組織学的所見(**Fig. 5**)：粘膜下層及び腸間膜にかけて著しく拡張したリンパ管組織が嚢胞状に認められ、拡張した管腔内にはリンパ管内皮細胞が証明された。以上より回腸に発生した海綿状リンパ管腫と診断された。

Fig. 3 The tumor existed in the mesenteric side of the jejunal wall, and extended to the mesentrium.

Fig. 4 The jejunal lumen had several yellowish elevated lesions which measured 5~8mm in diameter. Some nodular lesions with hemorrhage, which measured 3~4cm in diameter, narrowed the jejunal lumen.

術後経過：術後合併症は無く、2月10日に退院した。胃・小腸・大腸の精密検査を行ったが、異常所見は認められなかった。

考 察

澤井¹⁾の報告によると、本邦における十二指腸を除いた小腸リンパ管腫はわれわれの検索した範囲では1967年の渡辺²⁾の報告以来本症例を含め32例にすぎない。本疾患は好発年齢は無く発症年齢は様々で、特異的症状に乏しいため術前診断が困難とされており、発生頻度に関して論じるのは難しいと言われてきた。しかし、Railford³⁾の報告によれば症例16,000例(剖検11,500・手術4,500)の開腹検索を施行したところ、小腸リンパ管腫は1例のみであったことから、本疾患は

Fig. 5 Histopathological examination revealed the cavernous lymphangioma of the jejunum. The tumor had multiple cystic spaces of the lymph vessels, which were various sized and were lined by the endothelium. (Haematoxylin-Eosin stain, $\times 4$)

非常に稀な疾患とされている。最も多く認められた症状は腹部不定愁訴で、他に腹痛・消化管出血・腫瘤触知・排便異常といった症状の報告があり、合併症としては腫瘍の増大による腸閉塞・腸重積・腸軸捻転や、腫瘍の破裂・出血が報告されている¹⁾。われわれの経験した症例は、腫瘍内出血による腫瘍の急速な増大のため急性腹症を呈したと思われ、本症例のような経過をとった症例の報告は今までにみられていない。診断方法に関しては小腸造影・腹部 CT・腹部超音波・血管造影等で質的診断を行い、内視鏡検査で確定診断することが一般的である。画像所見は多房性・単房性・管内性・管外性によって異なり、特徴的所見に乏しい。本症例は管内性に発育した腫瘍であり、CT 像では隔壁で境された多房性腫瘍陰影で隔壁内は均一な water density であった。本疾患は良性疾患であるが、本症例のように合併症を併発すると緊急手術を要する状態となる。更に胃・十二指腸・大腸のリンパ管腫と異なり経過観察が困難であるため発見次第積極的に切除することが勧められている⁴⁾⁵⁾。腫瘍が小さく粘膜下に局限している症例であれば侵襲の少ない内視鏡的ポリペクトミーによって治癒するが、リンパ管残存による再発

や腸間膜リンパ管腫の合併の報告もあり、内視鏡的処置の適応となる症例は限られてくる⁶⁾⁷⁾⁹⁾。本症例に関してわれわれは開腹により腫瘍を完全に切除し得たと判断している。現在までの報告症例の腫瘍の発生数を検討すると、単発10例、多発13例で他の消化管腫瘍に比べて多発傾向が多いとされ⁸⁾、複数の消化管臓器に発生をみた症例も報告されているが⁹⁾、本症例では手術時の開腹所見及び術後の消化管臓器の精密検査で、回腸以外にリンパ管腫は認められていない。

結 語

腫瘍内出血のため急性腹症として緊急手術を施行された小腸リンパ管腫の稀な症例について報告した。

論文の要旨は、第74回信州外科集談会において発表した。

文 献

- 1) 澤井照光, 中尾 丞, 石井俊世他: 小腸リンパ管腫の 1 例—本邦報告例28例の検討, 日臨外医会誌 51: 327—330, 1990
- 2) 渡辺正幸, 寺崎 平: 空腸リンパ管腫の 1 例, 医療 21: 766—770, 1967
- 3) Railford TS: Tumors of the small intestine. Arch Surg 25: 122—177, 1932
- 4) Peters FTM, Rurgers EJT, Driessen WMM: Intraabdominal lymphangiomatous cysts in adults. Netherlands J Med 31: 152—157, 1987
- 5) Daniel S, Lazarenic B, Attia A: Lymphangioma of the mesentery of the jejunum. Report of a case and a brief review of the literature. Am J Gastroenterol 78: 726—729, 1983
- 6) Watson WL, McCarthy WD: Blood and lymph vessel tumors. Surg Gynecol Obstet 71: 569—588, 1940
- 7) 中村正博, 菊地直人, 星野清志他: 内視鏡的ポリペクトミーにて切除した回腸リンパ管腫の 1 例, Gastroenterol Endosc 28: 2616—2620, 1986
- 8) 加納宣康, 山田直樹, 原 聡他: 小腸リンパ管腫の 1 例, 日消外会誌 22: 867—870, 1989
- 9) 井上善文, 大久保修和, 福澤正洋他: 十二指腸・空腸上部・空腸間膜及び回腸に多発したリンパ管腫の 1 例, 日消外会誌 15: 1411—1415, 1982

A CASE OF INTESTINAL LYMPHANGIOMA WITH ACUTE ABDOMEN

Hiroko ARUGA, Yasuhiro MUNAKATA and Kouhei OKAMOTO

Department of Surgery, National Toshin Hospital

Hideyuki ICHIKAWA and Masatoshi KAKUUCHI

First Department of Surgery, Shinsyu University School of Medicine

A 40-year-old woman was emergently hospitalized with the complaints of acute lower abdominal pain and abdominal distension. Physical examination on admission showed abdominal bulging and the signs of peritonitis. Plain abdominal X-ray revealed few gas images in the pelvic cavity, and computed tomogram demonstrated a multilobular low density mass in the cranioventral side of the uterus. On the day of admission, emergency operation was carried out. A soft tumor $12 \times 7 \times 5$ cm in size, was observed in the mesenteric side of the jejunal wall with an extension to its mesentery. A 30 cm segment of the jejunum including the tumor was resected. The resected specimen was recognized several yellowish elevated lesions, and some nodular lesions which were soft and royal purple. The jejunal lumen was narrowed due to hemorrhage in the tumor. Histological diagnosis was made to be cavernous lymphangioma based on the finding that the tumor had multiple cystic spaces consisting of the lymph vessels, which were various sizes and were lined by the endothelium. There had been only 32 cases of cavernous lymphangioma of the small intestine reported in Japan from January 1967 to June 1990.