症 例

急性腹症を呈した成人腸間膜リンパ管腫の1例

総合木沢記念病院外科

田 辺 博 今 井 直 基 渡 辺 進 橋 本 高 志

岐阜大学臨床検査医学

下 川 邦 泰 池 田 庸 子

急性腹症にて発症した成人の腸間膜リンパ管腫の1例を経験したので報告する。症例は42歳、男性。上腹部痛と発熱を主訴として近医を受診、急性胆嚢炎の診断に当院を紹介された。WBC 13,900/mm³, CRP 3+と炎症所見を認めた。腹部超音波検査では上腹部に胆嚢とは異なる、境界明瞭で内部に蜂巣様構造を示す嚢胞性の病変を認めた。腹腔内に発生したリンパ管腫に感染が加わったものと診断し、保存的治療をした後手術を施行した。

開腹すると網嚢内に横行結腸間膜から発生した超手拳大の腫瘤を認めた。腫瘍は周囲と強固に癒着していたが剝離可能であり、これを摘出した。摘出標本は暗赤色で表面平滑な腫瘤で、断面は蜂巣様構造を呈していた。組織学的には炎症を伴ったリンパ管腫の像であった。本邦における成人の腸間膜リンパ管腫の報告は極めて少なく、その臨床的特徴について検討した。

索引用語：急性腹症、腸間膜リンパ管腫

はじめに

腸間膜嚢胞は、近年の画像診断の進歩に伴い増加する傾向にあるが比較的まれな疾患である。本邦でも300例ほどの報告例をみる¹⁾が、それらのほとんどは小児の腸間膜リンパ管腫である²⁾³⁾ため成人の報告は、極めてまれである。今回われわれは急性腹症を呈した成人の腸間膜リンパ管腫の1例を経験し、その臨床的特徴について検討したので報告する。

症 例

患者：42歳、男性。

主訴：上腹部痛。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成3年3月1日、特に誘因なく突然上腹部痛が出現、疼痛が軽減しないため某医を受診し急性胆嚢炎と診断され当院を紹介された。

入院時現症：血圧128/70、脈拍78整、体温38.5℃眼球結膜に黄染なく眼瞼結膜に貧血を認めず、胸部に異常なく、右上腹部に手拳大で辺縁明瞭な圧痛のある腫

瘍を触知し、同部に一致して筋性防御、Blumberg 徴候を認めた。

入院時検査所見：WBC 13,900/mm³, RBC 473×10⁴/mm³, Hb 14.3g/dl, Ht 41.1%, Plt 17.1×10⁴/mm³, 生化学検査は異常なく、腫瘍マーカーはAFP>5ng/ml, CEA>0.5ng/ml, CA19-9>10U/ml と異常を認めなかった。

腹部超音波検査：右上腹部で内部に蜂巣状構造を示し、境界明瞭な嚢胞状腫瘤を認めたが、胆嚢および腎とは区別された(図1)。

腹部造影CT所見：右上腹部において、周囲は濃染され内部はlow densityの多房性の嚢胞性腫瘤を認めたが、内部構造は均一であった(図2)。

腹部MRI所見(冠状断像)：右上腹部に存在し、T₁強調像で低信号となる境界明瞭な腫瘤を認め、内部にはかすかに蜂巣様の構造を認めた(図3)。

UGI所見：胃前庭部、大弯側に腫瘤による圧排像を認める(図4)。

以上の所見から腹腔内リンパ管腫の存在と嚢胞の感染を疑い抗生剤の投与による保存的治療を行ったのみ開腹手術を施行した。

図1 腹部超音波所見：境界明瞭で内部に蜂巣様構造を示す嚢胞性の病変を認める。

図2 腹部造影 CT 所見：周囲が濃染され、内部構造均一な嚢胞性病変を認める。

図3 腹部 MRI 矢状断所見：T₁強調画像では、右上腹部に低信号で内部にかすかに多房性構造を有する嚢胞性病変を認める。

図4 UGI 所見：胃前庭部、大弯側に腫瘤による圧排所見を認めた。

図5 手術所見：網嚢内に超手拳大で表面平滑な嚢胞性腫瘤を認める。

手術所見：平成3年3月14日、GOE全身麻酔下に手術を施行した。開腹すると腹水は認めず、腫瘍は網嚢内に存在した。大網を切離し腫瘍に達すると、それは横行結腸間膜より発生していることが確認され十二指腸下行脚を圧迫していた(図5)。腫瘍の壁は肥厚と癒着がみられたが、間膜との剝離は可能でありこれを摘出した。

摘出標本所見：摘出標本は11×9×5cmで表面平滑で灰白色から一部暗赤色からなる腫瘍で、剖面は薄い隔壁でしきられており、その中は小さい房よりなり蜂

図6 摘出標本所見：摘出標本は11×9×8cmで暗赤色の表面平滑な嚢胞性腫瘍であった(上図)。断面は薄い隔壁にしきられており、そのなかは多数の房からなり蜂巣様構造を呈していた(下図)。

図7 病理組織学的所見(H.E. ×40)：組織学的には炎症所見を有するリンパ管腫の像であった。

巣状構造を形成していた(図6a, b)。

病理組織学的所見：組織学的には嚢胞性病変を認め、内腔には壊死物質が存在し、壁には炎症細胞とコ

レスチリン針状細胞を貪食したマクロファージを認めた。内腔は一部扁平化した薄い内皮細胞におおわれており、炎症を伴ったリンパ管腫と診断した(図7)。

術後経過：術後の経過は良好で第24病日に退院した。

考 察

腸間膜嚢胞は比較的な疾患であり、1597年 Benevieni ら⁴⁾の報告を最初とし、欧米では約800例、本邦では約300例¹⁾の報告がなされている。腸管嚢胞は組織学的に種々のものから構成されているおり、その分類には Neukirch⁵⁾の分類(表1)がよく用いられている。そして多くのものはリンパ系起源のものであり、本邦でも約半数がリンパ管腫の報告例であり⁶⁾、特に小児例ではほとんどがそうである¹⁷⁾。

このような腸間膜リンパ管腫の発生機序にはさまざまな学説をみるが、胎生期に迷入したリンパ組織が増殖したとするもの⁸⁾、リンパ嚢の発生異常により末梢領域からのリンパが貯溜する⁹⁾との説が有力である。いずれにしても腸間膜リンパ管腫は発生学的な異常を原因とすることが多いため、好発年齢は小児期に集中がみられる。したがって今回われわれが経験したような成人における腸間膜リンパ管腫の報告例は極めて少なく、帖佐¹⁰⁾の報告を初めとして酒井ら¹¹⁾が32例を集計しているが、その後の報告はなく自験例をふくめ33例の報告を見るにすぎない。

このように本来小児期に好発する腸間膜リンパ管腫

表1 Neukirch の分類⁵⁾

A. Echte Cysten
1. Mesenterialsten lymphatischen Ursprungs
a) Stauungscysten
b) Lymphangiome (cystische und kavernöse)
2. Mesenterialcysten embliationalen, nicht lymphatischen Ursprungs
a) Enterocystome
b) Dermoide
c) Cysten' entstanden von abgesprengten Keimen des Urogenitaltractus (Wolffscher Körper usw)
B. Parasitäre Cysten
a) Echinococcuscysten
b) Cysticercus cellulosa
c) Gascysten
C. Cystoidbildungen
a) Blutcysten
b) Erweichungscysten
c) Verflüssigungscysten
d) Hydrops cysticus omenti

が、成人に発症する原因として、胎生期に発生したリンパ管腫が非常に緩徐に発育したため発見がおくれたこと¹²⁾があげられるが、それに加え外傷、変性、炎症などの後天的要因によりリンパ系の狭窄や閉塞をきたし腫瘍の急速な増大をきたすことも考えられている⁷⁾¹³⁾。

こうした成人の腸間膜リンパ管腫33例について、その臨床的特徴について検討を加えてみると、発生部位については、小児期においては空腸間膜が多いと報告されているのに対し、成人のそれは回腸間膜10例(28.6%)、結腸間膜13例(37.1%)と比較的下部の消化管に多い傾向を示した。こうした原因として西田ら⁸⁾は上部消化管ほど閉塞をきたしやすいため、症状の発現が早く小児期に発症することが多いとしている。また性別については男性に多いとするもの⁹⁾、女性に多いとするもの¹⁴⁾とわかれるが、成人例では男性15例、女性18例とやや女性に多い傾向にあった。

一方腸間膜リンパ管腫の臨床症状について渡辺ら¹⁵⁾は、1)無症状で検査、手術で偶然発見されるもの、2)腫瘍として触知するもの、3)イレウスなど消化管症状を呈するもの、4)腹膜刺激症状を呈するものの4型に分類しているが、成人例においては腸閉塞、腹部膨満など消化器症状を呈したものが14例(42.4%)と最も多く、ついで腹部腫瘤9例(27.3%)であった。また今回われわれが経験したような腹膜刺激症状を呈したものは6例(18.2%)に認められた。

このように腸間膜リンパ管腫が腹膜刺激症状を呈する機序としては、嚢胞の破裂、リンパの漏出、嚢胞内の出血、嚢胞の感染・炎症など考えられるが¹⁶⁾、自験例では手術所見および組織学的検討から、徐々に増大したリンパ管胞に感染を併発し、嚢胞全体の炎症が惹起され腹膜刺激症状を呈したものと推測された。

以上のように、本症は急性腹症として発症することも多いため、術前診断が困難であり、開腹してはじめて診断されることもあったが、近年の画像診断の進歩により、自験例のように術前診断の可能な症例も増加しつつある¹¹⁾¹⁶⁾。リンパ管腫の診断に最も有用なのは超音波検査と思われる¹¹⁾¹⁷⁾。この検査法は本症例に示されたようにリンパ管腫に特徴的な腫瘍内の多房性の構造が良く描出されるため、他の嚢胞性疾患との鑑別に有用である。CTでは嚢胞性の病変としてはとらえられるが、内部が均一になるためリンパ管腫の診断には不備であると思われる。またMRIでは腫瘍の存在部位をみるのには有用であるが、内部構造の描出はや

や不明瞭であり、超音波検査を上回るものではないと考えられる。

本症の治療は外科的切除が原則である。自験例のように剝離操作が可能な場合は良いが、腸管との関係が密であり、嚢胞の摘出により腸管の血行障害をきたす場合は、腸管の合併切除が必要となる¹⁸⁾。本症例は一般に悪性化は無いとされており、完全摘出できれば予後は良好であるが、多発例の報告もあり摘出時には見落としを注意する必要がある。このように成人の腸間膜リンパ管腫は、発生頻度からいえば極めてまれな疾患といえるが、急性腹症を呈することも多く、また画像的特徴を有することから、日常診療でも常に念頭に入れるべき疾患と思われた。

結 語

今回われわれは、急性腹症を呈した成人リンパ管腫の1例を経験したので、本邦報告例をふまえてその臨床的特徴について検討した。

文 献

- 1) 可児淳朗, 岸川輝彰, 伊藤 寛他: 嚢腫内出血を呈した小児腸間膜内嚢腫の1例, 日小児会誌 16: 1247—1251, 1980
- 2) Slocum MA: Surgical treatment of chylous mesenteric cyst by marsupialization. *Am J Surg* 41: 464—473, 1938
- 3) 田村 智, 岡崎和一, 森田雅範他: Small liver cancer を合併した小児リンパ管腫の1例, 日消病会誌 84: 1325—1330, 1987
- 4) Vaughn AM, Lees WM, Henry JW: Mesenteric cysts, a review of the literature and report of a calcified cyst of the mesentery. *Surg* 23: 306—317, 1948
- 5) Neukirch F: Cysten und pseudocysten des Mesenteriums. *Arch Klin Chir* 161: 730—746, 1930
- 6) Takeuchi S, Yamaguchi M, Sakurai M, et al: A case of mesenteric cyst diagnosed by ultrasound examination and a review of Japanese literatures. *Jpn J Surg* 9: 359—365, 1979
- 7) 三好信和, 末田泰二郎, 市川 徹他: 急性腹症として発症した腸間膜嚢腫の2例, 消外 5: 363—367, 1984
- 8) 西田 進, 猪野 満, 大黒 博他: 小児腸間膜嚢腫—自験2例と本邦における最近10年間の統計的観察—, 外科診療 15: 455—461, 1973
- 9) Sabin FR: The lymphatic system in human

- embryos with a consideration of the morphology system as a whole. *Am J Anat* 9: 43—91, 1909
- 10) 帖佐直喜: 大ナル帖間膜乳糜性囊腫ノ剔出治験例, 台湾医学雑誌 231: 544, 1923
- 11) 酒井章男, 上原孝一郎, 清松瑞一郎他: 成人腸間膜リンパ管腫の1例, 日臨外医会誌 51: 773—779, 1990
- 12) Peters FTM, Rutgers EJ Th, Driessen WMM: Intra-abdominal lymphangiomatous cysts in adults. *Netherlands. J Med* 31: 152—157, 191987
- 13) 高木 格, 白石アンナ, 水野 力他: 急性腹症を呈した腸間膜囊腫の1例, 名古屋病紀 7: 55—59, 1984
- 14) Takiff H, Calabria R, Yin L, et al: Mesenteric cysts and intra-abdominal cystic lymphangiomias. *Arch Surg* 120: 1266—1269, 1985
- 15) 渡辺恒明, 吉田 沖, 斎藤勝彦他: 大網リンパ性囊腫の1治験例と本邦文献の統計的観察, 外科 30: 579—585, 1968
- 16) 加納宣康, 山田直樹, 原 聡他: 汎発性腹膜炎を呈した横行結腸間膜リンパ管腫の1例, 日消外会誌 22: 973—976, 1989
- 17) 山口宗之, 野中杏栄, 菊池 裕他: 術前超音波検査で診断し得た腸間膜囊腫の1治験例, 本邦報告例の統計学的観察, 日小児外会誌 13: 771—778, 1977

A CASE OF MESENTERIC LYMPHANGIOMA PRESENTING WITH ACUTE ABDOMEN IN ADULT

Hiroshi TANABE, Naoki IMAI, Susumu WATANABE and Takashi HASHIMOTO

Department of Surgery, Kizawa Memorial Hospital

Kuniyasu SHIMOKAWA and Tsuneko IKEDA

Department of Pathology, Gifu University School of Medicine

A case of mesenteric lymphangioma presenting with acute abdomen in an adult is reported. A 42-year-old man was admitted to a near hospital because of upper abdominal pain, and was referred to the hospital with the diagnosis of cholelithiasis. On admission, inflammatory findings including a WBC count of 13,200 were shown. Abdominal ultrasonography revealed a multilocular cystic lesion which was seen under the gallbladder and in front of the right kidney. It was diagnosed as infected lymphangioma in the abdominal cavity. Surgery was performed after conservative therapy.

On laparotomy, a multilocular cystic mass was found in the tranverse mesocolon, and excised en bloc. Histopathologic findings indicated mesenteric lymphangioma with inflammation. Mesenteric lymphangioma in adults is very rare disease, and its clinical characteristics were discussed in domestic cases.