症 例

胸筋間に発生した囊状リンパ管腫の1例

日本大学第3外科 (主任: 田中 隆教授)

三 木 敏 生 高 野 靖 悟 渡 辺 善 広 河 野 洋 一
常 田 裕 岩 井 重 富 田 中 隆

患者は、16歳男性、左前胸部の腫大を主訴に来院し穿刺吸引にて一旦軽快したものの再び増大したため手術目的で入院した。術前検査で左大胸筋と小胸筋の間に存在する囊状腫瘍を認めた。再発を防ぐため流入リンパ管を同定する目的で左上肢リンパ管造影及び^{99m}Tc コロイドシンチグラムを施行した。直接流入するリンパ管を描出することはできなかったが、傍胸骨リンパ管との交通を示唆する所見を得た。腫瘍摘出術を施行し破綻なく重量254g、大きさ約15×13cmの緊満した波動性のある多房性の囊状腫瘍を摘出した。病理検査にて、囊状リンパ管腫の診断で悪性所見はなく、術後経過良好で約2年経過したが再発を認めていない。

索引用語: 囊状リンパ管腫, リンパ管造影, コロイドシンチグラム

緒 言

リンパ管腫は、一般に小児の頸部に好発するリンパ管起源の先天性囊胞性疾患である。皮膚などに見られる小さな限局性リンパ管腫を除けば、胎児期におけるリンパ管の形成過程において何らかの要因が作用しリンパ液の局所的貯留をもたらした過誤腫と考えられている¹⁾²⁾。通常出生時及び乳幼児期に発見され加療または経過観察が行われ、自然退縮する例も見られる³⁾⁴⁾。腫瘍が小型で増大傾向がなく、症状が少なければ経過観察が適切であると考えられるが、出血や感染を合併することもあるため発生部位によってまた増大傾向を認めた場合には何らかの処置が要求される。

今回われわれは、16歳男性で左前胸部の腫大を主訴に来院し、外来にて穿刺吸引施行し一旦軽快したものの再び増大したため、腫瘍摘出術施行し病理検査の結果囊状リンパ管腫と診断された1例を経験した。また術前検査において左上肢リンパ管造影および^{99m}Tc コロイドシンチグラムを施行し囊状へのリンパ流について精査したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例: 16歳, 男性。

主訴: 左前胸部膨隆。

現病歴: 1991年8月頃より左前胸部膨隆出現。徐々に増大したため1992年4月25日当科受診。直径約20cmの囊胞の診断で穿刺吸引を施行し、黄褐色漿液性の内容液240mlを吸引、細胞診ではclass IIであった。その後再び増大し、超音波検査、Computed Tomography (以下CT) 検査、Magnetic resonance imaging (以下MRI) 検査施行し囊状リンパ管腫の診断で手術目的にて7月17日入院となった。

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 外傷歴なし、1991年より水泳部に所属。

入院時現症: 身長164cm, 体重58kg, 血圧120/70 mmHg, 脈拍68/分, 整, 顔面, 頸部, 腹部等に異常なく、表在リンパ節の腫脹もなかった。左前胸部の膨隆を認めたが明らかな腫瘍は触知せず、わずかに弾性を認めた。胸腹部理学所見に異常はなかった。

入院時検査所見: 血液一般および生化学検査値に異常なく、腫瘍マーカーCarcinoembryonic antigens (CEA), Immunosuppressive acid protein (IAP) のいずれも正常範囲内であった。

超音波検査: 左大胸筋と小胸筋の間に隔壁を持つ囊胞状の腫瘍を認める (図1)。

MRI 検査: T1強調画像において、左大胸筋下に iso intensity な腫瘍を認め、胸腔に一部隔壁を認める。T2強調画像において、同部に胸腔が均一に high intensity な囊胞を思わせる腫瘍を認める (図2)。

図1 超音波検査：左大胸筋と小胸筋の間に隔壁を持つ嚢胞状の腫瘤を認める。

図2 胸部 MRI：a；T1強調像。左大胸筋下に腫瘤を認め、内部は iso intensity で一部隔壁を認める。b；T2強調像。内腔は均一に high intensity で嚢胞を思わせる腫瘤を認める。

左上肢リンパ管造影：腋窩のリンパ流は、嚢胞の後方を走行しており、嚢胞への流入は認められず、嚢胞

に伴ったリンパ管の圧排所見がみられる。

また、左上腕部に通常認められないリンパ節が造影され、24時間後にまだリンパ管内に造影剤が残存しており、これらは嚢胞によるリンパ管内圧の上昇を示していると考えられる（図3）。

99mTc コロイドシンチグラム：右傍胸骨部に比べて明らかに左傍胸骨部の主要リンパ組織集合部位へのコロイドの集積が認められ嚢胞には傍胸骨リンパ管が関与していることが推察される（図4）。

手術所見：左腋窩前腋窩線上より乳頭上5cmの部位に皮膚切開を行い、左大胸筋の外側より大胸筋を前方に挙上しつつ被膜におおわれた嚢胞状の組織を破綻することなく剥離摘出した。流入する主要血管及びリンパ管は同定しえなかった。

摘出標本：重量254g、大きさ約15×13cmの淡黄色の液体を透見しうる緊満性で波動性のある多房性の嚢状腫瘍であった（図5）。

内容液性状：内容液は表1のごとく血漿とほぼ同じ組成であり臓器リンパ液と考えられた。なお細胞診では class I であった（表1）。

病理組織学的所見：組織学的には、線維性結合組織内に様々な大きさの一層の内皮細胞におおわれた嚢胞組織が多くみられ、一部では海綿状に認められた。

また、間質には、リンパ球浸潤が認められるが、周囲への浸潤的な発育等を認めず、核の異形性も乏しく、

図3 左上肢リンパ管造影：嚢胞に伴ったリンパ管の圧排所見がみられる（矢印）。

図4 99mTc コロイドシンチグラム：左傍胸部部の主要リンパ組織集合部位へのコロイドの集積が認められる。

図5 摘出標本：黄色透明で緊満した波動性のある多房性の嚢状腫瘍。

結節状変化や乳頭状増殖等も認められない（図6）。

術後経過良好で術後10日後に退院となり、その後約2年経過したが再貯留していない。

考 察

嚢状リンパ管腫の発生と臨床像は症例が少ないため

表1 嚢胞内容液

外観	橙色混濁
pH	8.2
比重	1.022 (補正值)
リバルタ	+
有核細胞数	8,700 / μ l
糖定量	102 mg/dl
総蛋白	5.6 g/dl
尿素窒素	19.1 mg/dl
クレアチニン	1.3 mg/dl
尿酸	6.6 mg/dl
総ビリルビン	1.26 mg/dl
Na	148 mEq/l
K	5.8 mEq/l
Cl	114 mEq/l
LDH	602 IU/l
アミラーゼ	75 IU/l

図6 摘出標本組織像（HE 染色, $\times 100$ ）

に十分明らかにされていない。

リンパ管は発生途中で局所的拡張によって原始リンパ嚢を形成する。たとえば前主静脈と鎖骨下静脈の連絡部に発生する頸リンパ嚢や腸骨静脈と後主静脈の連絡部に発生する腸骨リンパ嚢などである。これらのリンパ嚢はその周囲の間葉細胞が侵入してリンパ節を形成するが、この間葉細胞の出芽が不十分であると腔の連絡が不十分となり、単なる嚢腫を形成し、嚢状リンパ管腫となるとされている⁵⁾。

Wagener (1887)⁶⁾は、リンパ管嚢腫を、その内皮細胞と貯留したリンパ液及び結合織の量的関係から組織学的に分類し、1) 単純性リンパ管腫、2) 海綿状リンパ管腫、3) 嚢胞状リンパ管腫に分類している。同一腫瘍内にこれらの組織型が混在し分類困難な症例も少なくないが、一般的に周囲が筋肉組織に囲まれた部位では、単純リンパ管腫や、海綿状リンパ管腫の型をとり、嚢状リンパ管腫は、周囲が疎性結合織で構成される部

位で多いとされている²⁾。本症例は大胸筋と小胸筋の間に存在し、リンパ管腫の発生する環境としては比較的高圧な状況であり、リンパ管腫の種別が発生部位の性状に関与しているという考えに矛盾する。これより、リンパ管腫は、先天性形成異常による過誤腫の一種であり、またその形態も初期のリンパ嚢形成時にある程度確定していると推定される。本症例は、原始リンパ嚢への間葉細胞の侵入が不十分であり嚢状リンパ管腫の形態を取っていたところに、身体の第二次成長期の発達かあるいは、水泳等の運動刺激によってリンパ流の貯留が生じ次第に巨大化したものと想像される。

今回われわれは、胸筋間に発生した嚢状リンパ管腫に対して再発を防ぐために病変部に流入していると考えられるリンパ管を造影またシンチグラムで描出する事によって知ろうと試みた。リンパ管造影によって腫瘤への流入リンパ管を画像上直接描出することは不可能であったが、^{99m}Tc コロイドシンチグラムによって間接的に傍胸骨リンパ管が関与していることが推察された。

また、左上肢リンパ管造影において、腋窩部位に輪郭の不明瞭なリンパ組織を認め未完成のリンパ管腫ではないかと思われた。

われわれの検索した限りでは、胸部の嚢状リンパ管腫にこのようなリンパ管造影を行った文献は認められなかった。しかし、流入リンパ管の同定ができれば手術以外のより侵襲の小さい治療法で根治することも考

えられ、また嚢状リンパ管腫の成因や臨床像等について有意義な所見が得られる可能性もある。以上より嚢状リンパ管腫の検査としてリンパ管造影およびコロイドシンチグラムは有用であると考えられる。

結 語

今回われわれは、左大胸筋小胸筋間に発生し急速に増大した嚢状リンパ管腫を経験した。本症例の流入リンパ管同定の目的で左上肢リンパ管造影及び^{99m}Tc コロイドシンチグラムを施行し、傍胸骨リンパ管との交通を示唆する所見を得た。またリンパ管造影より嚢状リンパ管腫の発生について先天性にリンパ管の異常を示す重要な所見を認めた。

文 献

- 1) Godart S: Embryological significance of lymphangioma. Arch Dis Child 41: 204—206, 1966
- 2) Bill AH, Sumner DS: A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. Surg Gynecol Obstet 120: 79—86, 1965
- 3) 中條俊夫, 佐伯守洋, 小方 卓他: 嚢状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 931—938, 1984
- 4) 池田恵一: Lymphangioma. 日小児外会誌 12: 763—771, 1976
- 5) 岡本直正: 臨床人体発生学. 岡本道正 編, 南江堂, 東京, 1983, p222—223
- 6) Wegener G: Über Lymphangiome. Arch Klin Chi 20: 641, 1877

A CASE OF CYSTIC HYGROMA BETWEEN THE MAJOR AND MINOR PECTORAL MUSCLES

Toshio MIKI, Seigo TAKANO, Yoshihiro WATANABE, Youichi KOUNO,
Yutaka TSUNEDA, Shigetomi IWAI and Takashi TANAKA
Third Department of Surgery Nihon University School of Medicine

A 16-year-old man was seen at the hospital because of the swollen left anterior chest wall. Ultrasonography (US) showed a cystic lesion. Paracentesis of the cyst was performed with a remission. However, it recurred after three months. The patient was admitted for surgical intervention. Computed tomography and US demonstrated that the cyst was located between the major and minor pectoral muscles. Lymphangiography of the left arm and the ^{99m}Tc colloidal scintigraphy were performed for determining the communication between the lymphatic system and the tumor. The lymphangiography displayed no positive relationship between both, but the result of ^{99m}Tc colloidal scintigraphy suggested that the cyst should communicate to the parasternal lymphatic system.

The tumor was surgically removed. The specimen revealed a yellowish multi-cystic lesion and was 254 g in weight and 15 × 13 cm in size. It was histopathologically diagnosed as cystic hygroma and there was no evidence of malignancy.

The patient had an uneventful postoperative course and no recurrence has been observed for about two years after the operation.