症 例

再発腸間膜リンパ管腫の1例

石川県済生会金沢病院外科

横 井 健 二 川 上 和 之 川 浦 幸 光

腸間膜リンパ管腫破裂による急性汎発性腹膜炎にて腫瘍切除術を施行後、3年目に再発を来した1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。症例は72歳、男性。上記術後3年目に腹部膨満感が出現し、再発が疑われ当科入院となった。腹部超音波検査、腹部CT検査にて右側腹部に辺縁不明瞭な多房性囊胞性腫瘍を認めた。上腸間膜動脈造影で腫瘍部に一致して無血管領域がみられた。血管新生像、tumor stainはなかった。開腹すると腫瘍は回腸から右結腸間膜の根部にあり、内部には淡黄色漿液性の液体が貯留し緊満していた。腫瘍のみを切除することは不可能と判断し、腫瘍および回腸を約60cm、上行結腸を約20cm 合併切除した。病理組織学的検査では腫瘍内部にスポンジ様の網目構造がみられ、組織学的に海綿状リンパ管腫と診断された。

索引用語：再発腸間膜リンパ管腫

はじめに

腸間膜リンパ管腫は比較的稀な疾患である。その症状は無症状のものから急性腹症を来すものまでさまざまであり、術前診断は困難とされている。今回、腸間膜リンパ管腫破裂による急性汎発性腹膜炎にて腫瘍切除術を施行後、3年目に再発を来した1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：72歳、男性。

主訴：腹部膨満感。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：平成2年6月5日、急激に生じた腹痛にて近医受診した。急性汎発性腹膜炎の診断にて開腹、術中診断は腸間膜腫瘍破裂であり、腫瘍切除術を施行した。腫瘍の境界が不明瞭なため、不完全切除が懸念されたが、腸管の温存を考え追加切除を行わず、ドレーンを挿入し手術を終了した。病理組織学的検査で腸間膜リンパ管腫と診断された。

現病歴：上記手術後、当科外来にて経過観察していたが、平成5年6月頃より、腹部膨満感が出現した。検査にて腫瘍再発が示唆された。以後、腫瘍が増大してきたため、再手術を目的に当科入院となった。

入院時現症：身長158cm、体重52.0kg、体温35.6℃。意識は清明、結膜に貧血、黄疸なし。胸部に異常なし。

図1 腹部単純X線写真：特記すべきことなし

腹部は平坦、軟で腫瘍は触知せず、圧痛なし。腸雑音は正常。その他特記すべきことなし。

血液生化学的検査：特記すべきことなし。

腹部単純X線写真(図1)：特記すべきことなし。

腹部超音波検査(図2)：右腎上極付近から側腹部に

図2 腹部超音波検査：右腎上極付近から側腹部にかけて多房性囊胞性腫瘍を認めた。隣接臓器との関係は辺縁不明瞭なため明らかではなかった。

図3 腹部 CT 検査：肝下面から右側腹部にかけて内部 density のほぼ均一な腫瘍を認めた。上腸間膜動脈の分枝が腫瘍内に巻き込まれていたが、血管壁への浸潤はないと予想された。

かけて多房性囊胞性腫瘍を認めた。辺縁不明瞭なため、隣接臓器との関連は明らかでなかった。

腹部 CT 検査 (図 3)：肝下面から、右側腹部にかけて内部 density のほぼ均一な腫瘍を認めた。上腸間膜動脈の分枝が腫瘍内に巻き込まれていたが、腫瘍と血管の間には脂肪層がみられ剥離は可能と予想された。

選択的腹部血管造影 (図 4)：上腸間膜動脈造影では腫瘍部に一致して無血管領域がみられた。回結腸動脈

図4 上腸間膜動脈造影：腫瘍部に一致して無血管領域がみられた。回結腸動脈と中結腸動脈が弧状に圧排、偏位していたが、血管壁は明瞭で浸潤はなかった。

と中結腸動脈が弧状に圧排され偏位していたが、血管壁は明瞭で浸潤はなかった。血管新生像, tumor stain はなかった。以上より腫瘍は右結腸間膜から小腸間膜

図 5 (上), 6 (下) 病理組織学的検査: HE 染色,
上: $\times 40$, 下: $\times 200$. 一層の内皮で覆われた多数の
腔を認めた。海綿状リンパ管腫と診断された。

表 1 Classification of mesenteric cysts

A. Embryonic and developmental cysts
1. Enteric
2. Urogenital
3. Lymphoid
4. Dermoid
5. Embryonic defects in early formation of lymphatic vessels and lymph nodes
B. Traumatic or acquired cysts
1. Those caused by injury
(a) Hemorrhage causing sanguineous cysts
(b) Rupture of lacteals
(c) Extravasation of chyle into surrounding tissue
C. Neoplastic cysts
1. Benign cysts
Hyperplastic lymphatic vessels resorting in lymphangiomata
2. Malignant cysts
Lymphangioendothelioma
D. Infective and degenerative cysts
1. Mycotic
2. Parasitic
3. Tuberculous
4. Cystic degeneration of lymph nodes and other tissue

にかけて存在していると予想された。また下腸間膜動脈造影では異常なかった。

手術所見:平成 5 年 8 月 24 日, 全身麻酔下に腹部正中切開にて開腹した。腫瘍は回腸から右結腸間膜の根部にみられ, 辺縁は不明瞭であり, 大きさは約 $10 \times 8 \times 5$ cm であった。内部には淡黄色漿液性の液体が貯留し腫瘍は緊満していた。腫瘍のみを切除することは不可能と判断し, 腫瘍および回腸末端を約 60 cm, 上行結腸を約 20 cm 合併切除した。残存した回腸, 上行結腸を端側吻合し, 手術を終了した。

切除標本および病理組織学的検査(図 5, 6):腫瘍内部にはスポンジ様の網目構造がみられた。組織学的には一層の内皮で覆われた多数の腔がみられた。また壁内には一部石灰化がみられ海綿状リンパ管腫と診断した。

術後経過は良好であり, 外来にて経過観察を行っているが再手術後 2 年の現在, 再発は見られていない。

考 察

腸間膜嚢胞は腹部腫瘍を来す疾患のなかでも稀であり, その頻度は入院患者 3 ~ 25 万人に 1 人と報告され

ている¹⁾。久保ら²⁾は 1985 年から 1989 年の 5 年間に 26 例の小腸腸間膜嚢胞を集計した。その分類は Bearhs ら³⁾によれば表 1 の如くである。この中で腸間膜リンパ管腫が最も多く, 本邦での頻度は過半数を越える。特に小児ではそのほとんどがリンパ組織由来である²⁴⁾。

リンパ管腫は組織学的に, (1) simple lymphangioma, (2) cavernous lymphangioma, (3) cystic lymphangioma に分類される⁵⁾。ただし Gerster⁶⁾は cavernous lymphangioma と cystic lymphangioma は時として組織学的に混在しており, 明確に分類はできないとしている。

リンパ管腫の発生機序は, (1) 胎生期の発育過程における, もしくは後天的な炎症, 機械的圧迫によるリンパ管組織の連絡, 交通欠如⁷⁾, (2) 迷入リンパ組織の増殖⁸⁾, (3) リンパ組織の腫瘍的増殖などが考えられる。この中で, 胎生期の発育異常による正常リンパ管系からの孤立, リンパうっ滞が最も有力な意見である。発症年齢が約半数の症例で 10 歳以下である⁹⁾ことから先天性疾患であることをうかがわせる。しかし, 本症例のように高齢者での発症や妊娠, 分娩後の女性で

の発症の報告もみられることから、外傷、炎症や機械的圧迫によるリンパ管閉塞、うっ滞も原因として考えられている。

Beller ら¹⁰⁾は臨床症状を、(1) 無症状で偶然発見されるもの、(2) 慢性の腹部症状をきたすもの、(3) 合併症による急性腹症として発症するもの、と3つに分類している。この中で問題となるのは(3)の合併症を来した場合で、可見¹¹⁾は小腸腸間膜嚢胞102例のうち急性腹症を来したのは52例(51%)であると報告した。合併症は具体的には、イレウス、嚢胞破裂による腹膜炎、嚢胞内出血、などが報告されているが、この中で小腸軸捻転によるイレウスの頻度が最も高い。

診断は一般に困難であるが、その原因としては、本疾患が急性腹症として発生し、緊急手術される例が多いためと考えられる。しかし、近年、画像診断の進歩により術前診断がつく症例も増加しつつあり、久保ら²⁾によれば最近の5年間における25例のうち9例(34.6%)に診断がついている。腸間膜嚢胞は超音波検査、腹部CT検査にて嚢胞性病変として捉えられる率が高い。また血管造影にて無血管領域の存在、主要血管の圧排、伸展などの所見が得られる¹²⁾。

治療は一般に腫瘍切除が原則である。しかし、腫瘍が腸管に近接するものや、小腸軸捻転を来したものの、腫瘍により腸管の通過障害のあるもの等は、腸管の合併切除がなされ、その率は26.3%との報告がある¹²⁾。腫瘍が多発していた場合や、主要動脈の支配領域全体に広がっていた場合、境界が不明瞭な場合、等には、亜全摘や穿刺、ドレナージによる治療も行われている。しかし、それらの治療は、先に記したリンパ管腫の後天的な発生機序などにより、再度、腫瘍組織の増大が危惧されること、また将来悪性化の可能性も否定できないことから望ましい方法ではない。さらに、成人や高齢者において、後天的な腸管もしくは腸間膜の炎症疾患や機械的圧迫の有無に関して検索、治療を行うことが、腸間膜リンパ管腫の発生機序の推測および再発を予防する為に重要と思われた。

予後に関して相川ら¹³⁾は3例の死亡例を報告しており、それぞれ、腸軸捻転、腸管吸収不全、再発で死亡している。再発した1例は、腫瘍摘出術の際に腫瘍が総腸骨動脈に強く癒着していた為、その1部が残されたものであり、組織学的にテラトームと診断された。術後1カ月目に再発にて死亡したが、詳しい死因は不明である。その他に再発例の報告は見当らず、本症例のように再発し再手術にて治癒せしめた例は極めて稀

である。本症の大部分は本質的に良性であるが、手術の際に腸管やその他、臓器の温存を優先し腫瘍の可及的切除に止めておくとも再発を来し予後不良となる可能性がある。万一再発し、何らかの合併症を生じた場合、再手術では腫瘍の完全切除の為、必要に応じて腸管等の合併切除を躊躇することなく行うべきであろう。

結 語

腸間膜リンパ管腫破裂による急性汎発性腹膜炎にて腫瘍切除術を施行後、再発を来し再手術を要した1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Hardin WJ, Hardy JD: Mesenteric cysts. Am J Surg 119: 640—654, 1970
- 2) 久保俊影, 山本時彦, 前川善水他: 急性腹症を呈した小腸間膜リンパ管腫の1例. 日臨外医会誌 52: 2120—2124, 1991
- 3) Bearhs OH, Edwards SJ, Malcolm BD: Chylous cysts of the abdomen. Surg Clin N Am 30: 1081—1096, 1950
- 4) 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, 1982
- 5) Wegner G: Uber lymphangiome. Arch Klin Chir 20: 641—707, 1877
- 6) Gerster JCR: Retroperitoneal chyle cysts with a special reference to the lymphangioma. Ann Surg 110: 389—410, 1939
- 7) Barnett LA, Branch LN: Retroperitoneal cystic lymphangioma. JAMA 173: 1111—1116, 1960
- 8) Sabin FR: The lymphatic system in human embryos with a consideration of the morphology of the system as a whole. Am J Anat 9: 43—91, 1909
- 9) 山口宗之, 野中杏栄, 菊地 祐他: 術前超音波検査で診断した腸間膜嚢腫の1治験例—本邦報告例の統計的観察—. 日小児外会誌 13: 771—778, 1977
- 10) Beller AJ, Nach RL: Cystic lymphangioma of the greater omentum. Ann Surg 132: 287—296, 1950
- 11) 可見淳郎, 岸川輝影, 伊藤 寛他: 嚢腫内出血を呈した小児腸間膜嚢腫の1例. 日小児外会誌 16: 1247—1251, 1980
- 12) 山本 宏, 安田是和, 笠原小五郎他: 急性腹症にて発症し、術前診断された腸間膜嚢腫の1治験例—超音波診断と血管造影の所見を中心に—. 日消病会誌 81: 1842—1847, 1984
- 13) 相川直樹, 吉崎 聡, 鶴田典夫他: 腸間膜嚢腫の1治験例と文献的考察. 臨外 27: 1165—1169, 1972

A CASE OF RECURRENT MESENTERIC LYMPHANGIOMA

Kenji YOKOI, Kazuyuki KAWAKAMI, Yukimitsu KAWAURA

Department of Surgery, Ishikawaken Saiseikai Kanazawa Hospital

A patient with mesenteric lymphangioma which ruptured to cause acute generalized peritonitis 3 years before had a recurrence. This paper describes the case with a review of the literature.

A 72-year-old man was admitted to the hospital for suspected recurrence of mesenteric lymphangioma because abdominal fullness developed 3 years after the operation for the primary lesion. Abdominal ultrasonography and abdominal CT revealed a multi-locular cystic tumor situated in the right side of the abdomen. Supra-mesenteric arteriography showed a displacement of arterial branches, as well as stretching of an artery because of the mass, although the method did not show tumor vascularity. Laparotomy was performed. The tumor was seen at the root of mesentery from the ileum to right colon and filled with light-yellowish serous fluid. It was impossible to resect the tumor alone from the mesentery, and the tumor with the ileum by about 60 cm and the ascending colon by about 20 cm was excised. Histopathologically numerous sponge-like cavities were observed in the tumor. Histologic diagnosis turned out cavernous lymphangioma.