症 例

大腸リンパ管腫の2例

茨城県立中央病院外科

井 上 真 也   吉 見 富 洋   朝 戸 裕 二
登 内   仁   植 田 英 治   小 泉 澄 彦

大腸粘膜下腫瘍の中では比較的稀なリンパ管腫2例を経験した。

症例1は、54歳、女性。大腸癌検診の結果、便潜血反応陽性の指摘を受け、近医で実施した注腸造影検査で横行結腸肝彎曲部付近に隆起性病変を認められ、精査目的に当科に入院した。大腸内視鏡では同部に表面平滑で光沢、透明感があり、鉗子の圧迫によって容易に変形する半球状の粘膜下腫瘍様隆起性病変が認められた。リンパ管腫を疑い横行結腸部分切除術を施行した。病理組織学的にリンパ管腫と診断した。

症例2は、78歳、男性。横行結腸癌に対し、結腸部分切除術後約5カ月時の大腸内視鏡にてS状結腸に症例1と同様の隆起性病変を4カ所に認めた。穿刺吸引により縮小し、リンパ管腫を強く疑った。現在経過観察中である。

本邦報告例についての文献的考察を加え報告する。

索引用語：大腸リンパ管腫、粘膜下腫瘍

緒 言

われわれは検診を契機に発見された症例と大腸癌切除術後追跡中の大腸内視鏡検査により発見された症例の大腸リンパ管腫2症例を経験した。

リンパ管腫の発生は全身性にみられるが、消化管には少なく¹⁾、中でも大腸に発生することはきわめて稀²⁾とされている。そのうえ本症は粘膜下腫瘍の形態をとることから手術症例で正確に術前診断がなされた症例は少ない(表1a)。しかしながら、本症は特異な形態的特徴を有することが知られており³⁾¹²⁾、術前診断は必ずしも不可能ではない。本症は良性疾患であり、術前診断できれば患者の意思を反映できる治療法を選択できると考える。本稿においては、その診断根拠と鑑別診断、治療法について文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1：54歳、女性。

主訴：特になし。

既往歴：30歳時、虫垂切除術を受けた。

家族歴：特記すべき事なし。

現病歴：町の大腸癌検診時便潜血陽性を指摘され、二次検査として注腸造影検査を近医で受けた。その結

果、横行結腸に隆起性病変を認めたため精査加療目的に当科に1995年6月12日紹介入院となった。

入院時現症：身長157cm、体重41kg。貧血黄疸無く、胸部聴診上異常なし。腹部は平坦、軟で圧痛および腫瘤は認められず、肝・および表在リンパ節は触知されなかった。

入院時検査所見：血液生化学検査、腫瘍マーカーに特に異常値を認めず、胸部・腹部X線にも異常所見は指摘されなかった。

注腸造影検査所見(図1上)：横行結腸肝彎曲部付近に約3cm大の表面平滑、立ち上がりなだらかで境界明瞭な陰影欠損像が認められた。ハウストラは保たれており、また圧迫で形状が容易に変化し柔らかい性質のものであると推測された。

大腸内視鏡検査所見(図2)：横行結腸肝彎曲部付近に大小の内腔に突出した透明感のある表面平滑な隆起性病変を4個認めた。最大のものは約1/4周性であった。隆起部の粘膜は周囲健常部の粘膜と同色調であり、鉗子による圧迫で形態の変化が容易に認められた。生検による病理組織学的所見は正常大腸粘膜であった。

CT所見(図1下)：同部位は造影剤によるenhancementを認めず、筋肉より低いCT値を有する腫瘤として認められた。

1997年2月17日受付 1997年6月10日採用

図1 注腸検査所見(上)とCT所見(下):注腸検査所見で横行結腸肝彎曲部付近に半球状の陰影欠損像を認めるが、同病変は体位変換、圧迫により容易に形態の変化を示した。
CTでは同部結腸壁に造影効果を認めない water density の mass を認めた(↓)。

MRI 所見:同部位は T2強調画像で high intensity な腫瘤としてとらえられ、内部はおそらく水分と考えられた。

手術所見:これらの所見より横行結腸原発のリンパ管腫を強く疑った。患者の希望で、横行結腸部分切除術を施行した。漿膜側に異常所見なく、触診上柔らかい腫瘤の存在を確認し同部を含む約26cmの横行結腸を部分切除した。腫瘤は最大 $2.8 \times 2.0 \times 1.5$ cm のものを含め4カ所に認め、その正常は柔らかく平滑で透明感があり表面は周囲と同様の正常粘膜で被われており潰瘍形成などは認められなかった(図3)。なお剖面は多房性で無色透明な漿液状の内容物が認められた。病

図2 大腸内視鏡所見:正常粘膜に被われた、淡黄色で透光性のある半球状の隆起性病変を認める。鉗子の圧迫にて容易に変形した(症例1が上、症例2が下)。

理組織的に粘膜下層に薄い壁からなる拡張したリンパ管の増生を認め、リンパ管腫と診断した(図3)。

症例2:78歳、男性。

主訴:特になし。

既往歴:1996年2月2日横行結腸癌に対し、横行結腸切除術(D3)を施行した。組織学的には, se, n3(+), P0, H0, M(-), stage IIIbであった。

家族歴:特記すべきことなし。

現病歴:術後、外来追跡中、直腸診でダグラス窩に硬結を触知し、腹膜播種を疑い化学療法を施行した。CTでは、肝転移はなく、腹水も認められなかった。1996年7月大腸内視鏡検査を施行したところ、再発所見はなかったが、S状結腸に約1/4周性の柔らかくやや青みを帯びた透明感のある半球状の粘膜下腫瘍様の隆

図3 切除標本と病理所見：切除標本（上）では表面平滑で、内部に透明な液体を有する4個の隆起性病変を認めた。最大のものは 2.8×2.0 cmであった。病理所見（下）では粘膜下層に拡大した管腔がみられ、中にはリンパ液を満たしている。その中腔は一層の内皮細胞に被われていた（H.E. 染色、 $\times 40$ ）。

起性病変を4カ所に認めた（図2）。リンパ管腫を疑い、患者の希望に従い穿刺し経過観察の方針とした。穿刺したところやや黄色味があった混濁のない透明の内容物が20ml吸引された。穿刺吸引にて、腫瘍は縮小し、リンパ管腫と確診した。穿刺液の細胞診の結果は、好中球、リンパ球を認めるのみであった。

考 察

大腸リンパ管腫は1932年 Chisholm ら⁵⁾により初めて報告され、本邦では1965年吉利ら⁶⁾の報告が最初である。大腸の非上皮性腫瘍の中で大腸リンパ管腫は少なく³⁾、原ら⁴⁾によれば、大腸非上皮性腫瘍は剖検例1,130例中50例でそのうち6例が本症であったとされている。われわれの検索した範囲では本邦において、現在まで148例の症例報告があり、近年大腸検査法、とりわけ内視鏡検査技術の進歩によりその報告例も増加している。

男女比は2：1で男性に多く、年齢分布は1～83歳で、特に50～60歳代に多く平均年齢は55歳であった。

表1-a) 本邦報告例の術前診断

粘膜下腫瘍	
脂肪腫	5
平滑筋肉腫	3
リンパ管腫	36
血管腫	1
不明	45
polyp	22
癌	1
囊腫	11
その他	21

表1-b) 腫瘤径と治療法

長径(cm)	症例数	polypectomy	外科的切除
—0.9	10	5	5
1.0—1.9	37	27	10
2.0—2.9	30	13	15
3.0—3.9	27	2	24
4.0—4.9	10	1	9
5.0—5.9	13	2	11
6.0—	7	1	6

占拠部位は横行結腸43例(29%)、上行結腸40例(27%)、盲腸23例(16%)で右半結腸に多い傾向がみられた。

発見時の症状としては、腹痛が多く、その他下血、下痢、腹部不快感などがあるが、本疾患に特異的な症状はなく偶然に発見されることが多いようである。また、術前診断をみると、polyp、癌などの上皮性腫瘍や、脂肪腫、平滑筋肉腫などの粘膜下腫瘍と誤診された例もみられる。また単に粘膜下腫瘍と診断された例もあり、正しくリンパ管腫と診断に至った例は半数にも満たない（表1a）。しかしながら、大腸リンパ管腫は、特異な肉眼形態像を有するため知っていれば診断に近づけると考える。

特徴的な注腸造影検査所見として⁷⁾、1) 辺縁鮮明で、類円型、分葉状あるいは半球状の腔内性陰影欠損、2) 圧迫・二重造影による形状・大きさの変化、3) 粘膜面には著変のないこと、などがあげられている。症例1の注腸造影所見は、これらの所見に合致している。

大腸内視鏡像では、一般の粘膜下腫瘍形態および上記したX線の形状に加え、1) 色調は周囲粘膜に比べ灰白調である、2) 透光性の透明感がある、3) 体位変換により形状が変化することが特徴としてあげられ、また、4) 鉗子による圧迫によりその軟らかさと波動性が認められる（Cushion sign 陽性）とされている⁸⁾。今回の2症例とも、透明感のある表面平滑な隆起が認め

られ、鉗子による圧迫で容易に形態の変化が認められた。

鑑別診断では、血管腫はリンパ管腫と同様液状物を有する粘膜下腫瘍であることから、リンパ管腫と同程度の柔らかさを有するが、内容物として血液を貯留しているため特徴的な青ないし赤色調を有することが多く、透明感のないことから本症と鑑別される⁹⁾。脂肪腫も表面平滑な粘膜下腫瘍で Cushion sign を認めるが、黄色調で透明感がなく体位変換や送気では形状の変化がみられないことが鑑別点となる¹⁰⁾。また、内視鏡時の鉗子による生検の際にリンパ液の流出が起こり、腫瘍の縮小がみられることも本症の特徴とされる。そのことで術前に診断し得た例も報告されている¹¹⁾。両症例とも、以上の点をふまえ大腸内視鏡で、リンパ管腫を強く疑い、特に症例2では局注針による穿孔吸引でリンパ液が吸引され腫瘍の縮小がみられたことにより確診可能であった。

他の画像診断として、CT・MRI 検査を実施したが、CT 検査では直径3cm の円形の腫瘍として描出され、またその CT 値は water density であり、造影効果は認められなかった。これは他の報告例¹²⁾での CT 結果と合致している。他の粘膜下腫瘍では、脂肪腫は一般に low density な腫瘍として描出される¹³⁾ため本症と鑑別され、また本症は造影効果が認められないことより、平滑筋腫、血管腫、線維腫などと鑑別できる。

治療法としては、外科的切除が80例、内視鏡的 polypectomy 例が51例であり(図1b)、polypectomy の報告が近年増加傾向にある。また、内容液を排出し病変の縮小がみられたために経過観察した症例が7例みられている。その中で高山ら¹⁴⁾は、2cm の大腸リンパ管腫に穿刺吸引を施行し一旦縮小したが、1ヵ月後には再び大きさの増大を認めた例を報告している。また、斉藤ら¹⁵⁾は内容液の吸引により、縮小し1年後に無再発の症例を報告している。症例2では、今後の経過観察が必要と考えられる。

リンパ管腫は良性であり、しかも悪性化の報告はみられないことから、2cm 以下のものについては診断をかねたポリペクトミーの適応として、過大な侵襲を避けるべきという意見が大勢を占めている⁸⁾。しかし、大きさが1cm の場合でもポリペクトミー後に腸管穿孔を来した報告¹⁶⁾もあり注意が必要である。宇野ら¹⁷⁾は腫瘍が原因となって通過障害をきたす症例もあり、腫瘍の長径が3cm 以上の場合には完全な切除が望ましいと述べている。また本邦の報告例(表1b)でも腫瘍

の長径が3cm を越えるものでは、外科的切除が増加している。

症例1は、長径が術前所見で約3cm とやや大きく多発しており、放置した場合や、各種治療法を施行した場合の危険性を患者に話し、患者は外科的切除を選択した。

症例2では、穿刺により縮小したために経過観察の方針を選択した。

最近では、大腸良性腫瘍に対して内視鏡下切除が実施される頻度が増加しているが、内視鏡下切除を施行するには腫瘍の大きさや症状などを考慮して適応を決定する必要があり、内視鏡下切除による穿孔の可能性のある場合については外科的切除の選択も考慮すべきと考える。

特に良性腫瘍が考えられる疾患では患者に、放置した場合と各種治療法をした場合の予後、危険性などを説明し患者の希望を最大限に活かした治療法を選択すべきであると思われる。

結 語

横行結腸リンパ管腫の2例を経験したので、本邦報告例の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Anderson WAD: Pathology. The CV Mosby Co, St Louis, 1971, p764—765
- 2) Ehrlich JC, Hunter OB Jr: Tumors of the gastrointestinal tract. Surg Gynecol Obstet 85: 98—106, 1947
- 3) Helwig EB: Benign tumors of the large intestine. Surg Gynecol Obstet 76: 419—426, 1943
- 4) 原 宏介, 金沢暁太郎, 山城守也他: 大腸非上皮性良性腫瘍—1130例の連続剖検例による—。日本大腸肛門病会誌 30: 498—504, 1977
- 5) Chisholm AJ, Hillkowitz P: Lymphangioma of the rectum. Am J Surg 17: 281—282, 1932
- 6) 吉 利和, 織田敏次, 金子栄蔵他: 上行結腸リンパ管腫の1例。日臨 23: 2264—2267, 1965
- 7) Arnett NL, Friedman PS: Lymphangioma of the colon. Radiology 67: 882—885, 1956
- 8) 唐沢博之, 三浦敏洋, 牧野孝史他: 内視鏡的ポリペクトミーにより診断し得た大腸リンパ管腫の2例。消内視鏡の進歩 26: 330—334, 1985
- 9) 星加和徳, 萱嶋英三, 小塚一史他: 直腸・S 状結腸海綿状血管腫の1例。Gastroenterol Endosc 28: 1046—1051, 1986
- 10) 今岡友紀, 清原芳郎, 武田範好他: 内視鏡的ポリペ

- クトミーにて診断しえた大腸脂肪腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 26: 266—270, 1984
- 11) 木村剛典, 岸辺俊彦, 須藤俊之他: 横行結腸に発生したリンパ管腫の1例. *日本大腸肛門病会誌* 38: 819—823, 1985
- 12) 飯沼昌二, 吉川敏一, 森田 豊: X線CTが診断に有用であった上行結腸リンパ管腫の1例. *消化器科* 13: 365—370, 1990
- 13) 黒川博之, 熊田六郎: CTにて診断しえた大腸脂肪腫の1例. *臨放線* 32: 977—880, 1987
- 14) 高山哲夫, 杉本吉行, 小川 裕他: 横行結腸リンパ管腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 24: 1755—1759, 1982
- 15) 齊藤伸一, 岡村信一, 坂本輝彦他: 大腸リンパ管腫の3例. *消内視鏡の進歩* 35: 347—350, 1989
- 16) 若林時夫, 鈴木邦彦, 田辺 釧他: ポリペクトミーにて診断しえた上行結腸リンパ管腫の1例. *Gastroenterol Endosc* 28: 440, 1986
- 17) 宇野良治, 齊藤 博, 棟方昭博他: 多発性横行結腸リンパ管腫の1例. *青森中病医誌* 33: 23—27, 1987

TWO CASES OF LYMPHANGIOMA OF THE COLON

Shinya INOUE, Fuyo YOSHIMI, Yuji ASATO, Hitoshi TONOUCHI,
Eiji UEDA and Sumihiko KOIZUMI

Department of Surgery, Ibaraki Prefectural Central Hospital

Lymphangioma is a rare tumor of the large intestine. We recently experienced two cases of such a tumor.

Case 1, a 54-year-old female. Occult blood in the stool was detected by mass screening. Barium enema examination revealed the presence of a hemispheric defect with a smooth surface in the transverse colon. Colonofiberscopic examination showed a pale yellow tumor with an overlying smooth mucosa. The elevated lesion strikingly changed in shape with postural change or compression with biopsy forceps. Lymphangioma of the colon was suspected. Partial colectomy including the site of the lesion in the transverse colon was performed. Four soft elevated lesions were found in the resected colon. Histological diagnosis was lymphangioma in the transverse colon.

Case 2, a 78-year-old male. Transverse colectomy was performed 5 months earlier, because of transverse colon carcinoma. Colonofiberscopic examination for recurrence revealed cystic tumors with fluctuation in the sigmoid colon. The size of the tumor was reduced by puncture and a clear fluid was aspirated from the tumor. It was diagnosed as lymphangioma of the sigmoid colon.