

## 症例報告

### 成人の小腸間膜嚢胞状リンパ管腫の1例

清時 秀, 西川 潤, 藤原恵子, 齋藤真理, 浜辺功一, 岡本健志,  
檜垣真吾<sup>1)</sup>, 徳久善弘<sup>2)</sup>, 権藤俊一<sup>3)</sup>, 岡 正朗<sup>2)</sup>, 坂井田功

山口大学医学部応用分子生命科学系・内科学第一講座 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)  
山口大学医学部附属病院光学医療診療部<sup>1)</sup> 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)  
山口大学医学部応用分子生命科学系・外科学第二講座<sup>2)</sup> 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)  
山口大学医学部附属病院病理部<sup>3)</sup> 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)

**Key words** : 嚢胞状リンパ管腫, 腸間膜, 成人

#### 和文抄録

症例は46歳男性。近医の腹部エコーで臍尾部近傍に腫瘤を認めたため当科へ紹介された。腹部CTで小腸間膜根部に約50mm大の低吸収域の腫瘤性病変を認めた。腹部MRIではT1強調像で低信号, T2強調像で高信号の多房性腫瘍を認めた。悪性の可能性も否定できず, 診断的意味も含め, 外科的切除を施行した。腫瘍は表面平滑, 弾性軟で, 他の周囲臓器への癒着は認めなかった。腫瘍は組織学的に嚢胞状リンパ管腫と診断した。リンパ管腫は小児の頭頸部に好発する良性腫瘍であるが, 成人の腸間膜に発生したリンパ管腫はまれであるため報告する。

#### はじめに

リンパ管腫は小児の頭頸部に好発する良性腫瘍であるが, 成人の腸間膜に生じたリンパ管腫は比較的まれである。今回, 筆者らは腹痛を契機に発見された腸間膜由来の嚢胞状リンパ管腫を経験したため, 文献的な考察を加え報告する。

#### I 症例

患者: 46歳, 男性。

主訴: 腹部腫瘤の精査目的。

既往歴: 25歳時に尿道結石。

嗜好歴: 喫煙1日40本26年間, 飲酒歴無し。

家族歴: 祖父, 母に大腸癌。

現病歴: 2007年11月中旬より心窩部痛, 発熱が約2日間続いたため, かかりつけ医を受診した。抗生物質などの内服加療により症状は軽快したが, 同院で施行された腹部エコーで臍尾部近傍に内部不均一な約60mm大の低エコー腫瘤を指摘された。CT検査においても同部に60mm大の腫瘤を認め, 腸管由来の腫瘍が疑われたため12月初旬に当科へ紹介された。

入院時現症: 身長165.4cm, 体重64.3kg, 血圧98/70mmHg, 脈拍68/min, 整, 体温36.5℃。腹部は軟, 平坦で腫瘤を触れず, 圧痛を認めない。肝臓, 脾臓は触れない。

入院時検査所見 (表1): 末梢血液検査, 生化学検査ともに異常所見は認めなかった。腫瘍マーカーはCEA, CA19-9ともに正常範囲内であった。便潜血反応は陰性であった。

腹部超音波検査 (図1): 臍尾部背側に径54×29mm大の内部エコー不均一で境界明瞭な腫瘤を認めた。ペルフルプタン (ソナゾイド®) による造影

表1 入院時血液検査所見

WBC	7750 / $\mu$ l	LDH	126 IU/L
RBC	515 $\times 10^4$ / $\mu$ l	T.cho	212 mg/dl
Hct	48.3 %	TG	162 mg/dl
Hb	16.2 g/dl	ChE	299 IU/L
Plt	20.9 $\times 10^4$ / $\mu$ l	BUN	13 mg/dl
TP	6.4 g/dl	Cre	0.89 mg/dl
Alb	4.1 g/dl	Na	141 mmol/L
FBS	97 mg/dl	Cl	107 mmol/L
T.Bil	0.6 mg/dl	K	4.2 mmol/L
D.Bil	0.1 mg/dl	CRP	0.14 mg/dl
ALT	19 IU/L	CEA	2.1 ng/ml
AST	13 IU/L	CA19-9	2.0 U/ml
ALP	241 IU/L	CA125	5 U/ml
$\gamma$ -GTP	36 IU/L	可溶性IL-2レセプター	479 U/ml
AMY	46 IU/L		

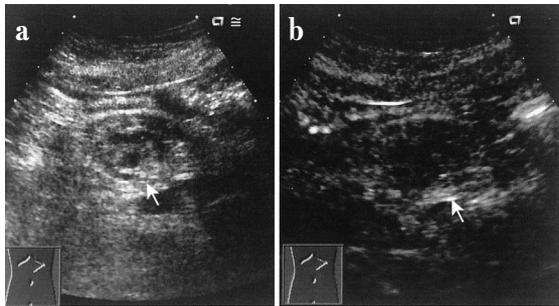


図1 腹部超音波検査

- a : 臍尾部背側に径54×29mm大の内部エコー不均一で境界明瞭な腫瘍を認めた。  
 b : 造影エコーでは40秒後に隔壁と思われる部分に血流を認めた。

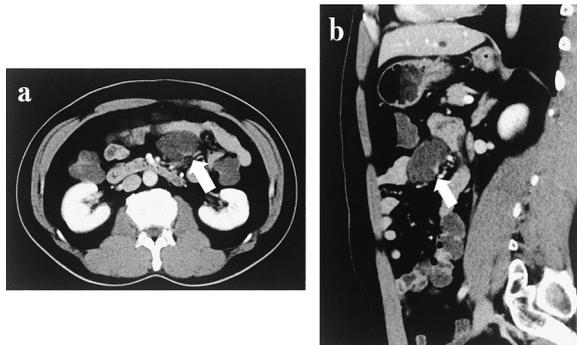


図2 腹部～骨盤部造影CT

- a : 小腸間膜根部に径50×35mm大の内部低吸収な腫瘍性病変を認めた(矢印)。腫瘍内部の造影効果は乏しく、隔壁様構造部分に造影効果を認めた。  
 b : MPR像。小腸と腫瘍に明らかな連続性は認めなかった。

超音波検査では、注入して40秒後に腫瘍内部に血流を認めた。

腹部造影CT検査(図2)：小腸間膜根部に径50×35mm大の低吸収域の嚢胞状腫瘍性病変を認めた。腫瘍の境界は明瞭で、分葉状の形態を呈していた。腫瘍内部の造影効果は乏しく、微細な隔壁様構造部

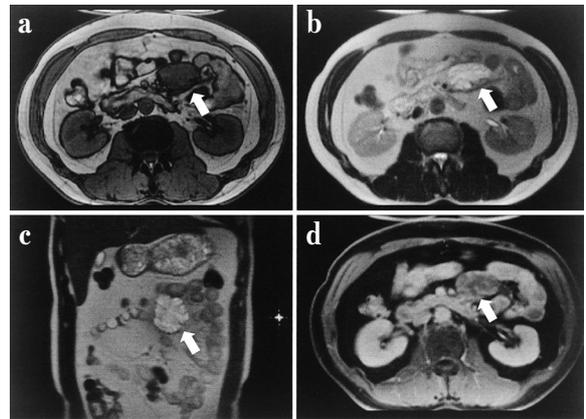


図3 腹部MRI

- a : T1強調像。腫瘍(矢印)は低信号であった。  
 b : T2強調像。腫瘍は高信号を呈し、内部に隔壁構造を認めた。  
 c : T2強調像矢状断。小腸との境界は明瞭であった。  
 d : ガドリニウム造影。隔壁に造影効果を認めた。

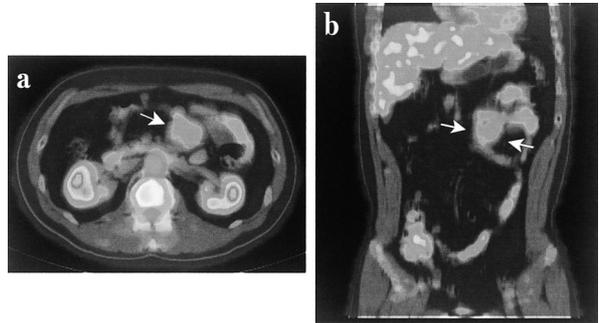


図4 FDG-PET

- a : 小腸間膜内の腫瘍部位に一致して、軽度のFDGの集積を認めた。Maximum standardized uptake value (SUVmax)は早期相では2.24、後期相では1.84であった。  
 b : 矢状断像。

分に造影効果が認められた。小腸と腫瘍は明らかな連続性は無く、腸管外病変と考えた。

腹部MRI検査(図3)：T1強調像で低信号、T2強調像で著明な高信号を呈する多房性嚢胞状の腫瘍として認めた。

腹部血管造影検査：腫瘍は造影効果乏しく、腫瘍濃染像を認めなかった。

FDG-PET検査(図4)：小腸間膜内の腫瘍部位に軽度のFDGの集積を認めた。その他の部位に明らかな集積は指摘されなかった。

ダブルバルーン内視鏡検査：経口アプローチで下部空腸まで挿入した。観察範囲には管腔内へ発育する腫瘍などの病変は認めなかった。

以上の検査結果より、小腸間膜より発生した嚢胞

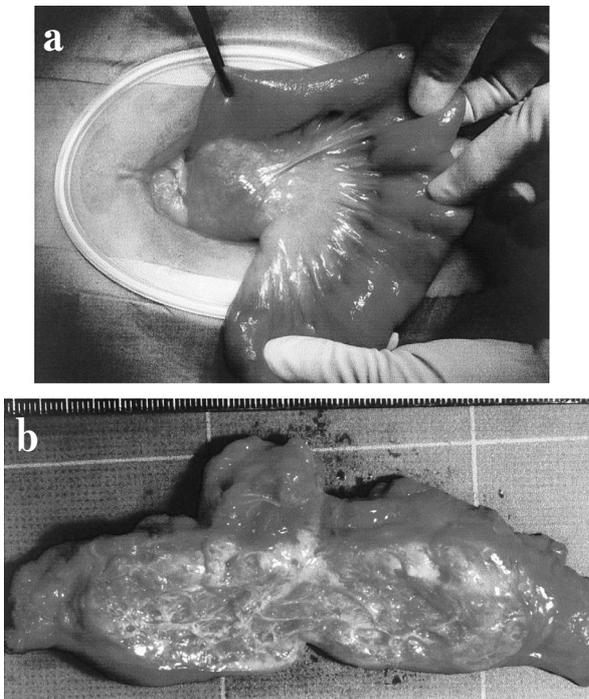


図5 手術所見

- a : トライツ靱帯よりすぐ肛門側の空腸間膜に弾性軟な腫瘍を認めた。
- b : 腫瘍サイズは51×31mmで、腫瘍内部は小さな囊胞が集簇した多房性の構造を認めた。

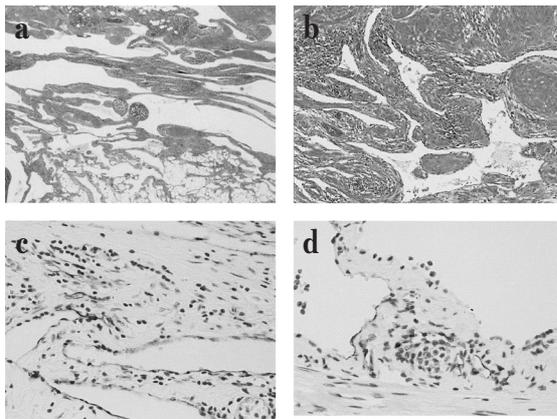


図6 病理組織像

- a : H.E.染色 (×40). 拡張したリンパ腔の増生と、一部にリンパ球集簇やリンパ濾胞を認めた。
- b : H.E.染色 (×100). 囊胞壁内に平滑筋を認め、囊胞壁の内皮細胞は扁平な形態を呈していた。
- c : CD31染色 (×400).
- d : D2-40染色 (×400).

状リンパ管腫を疑われたが、5 cmを超える腫瘍であり、悪性の可能性も否定できず、診断の意味も含め、外科的切除を施行した。

手術所見 (図5) : トライツ靱帯よりすぐ肛門側空腸の腸間膜に大きさ5 cmの腫瘍を認めた。腹水貯

留は認めず、腫瘍は表面平滑、弾性軟で、周囲臓器への癒着は認めなかった。腸間膜根部に近かったが、腸間膜内の血管を損傷することなく腫瘍が摘出でき、腸管の切除は避けることができた。腫瘍断面は小さな囊胞が集簇した構造を呈していた。腫瘍内部には出血を伴った粘稠な内容液を12ml認め、病理細胞診にて内容液中に悪性細胞は認めなかった。

病理組織学的所見 (図6) : 扁平な内皮細胞に覆われた囊胞の集簇を認めた。囊胞壁には平滑筋を認め、部位によってはリンパ球の集簇やリンパ濾胞を認めた。一部出血があり、ヘモジデリンの沈着と泡沫細胞の集簇巣を伴っていた。悪性所見は認めなかった。免疫染色にて、囊胞内皮細胞はD2-40 (+), CD31 (+), CD34 (-), 第VIII因子関連抗原 (+)であった。以上より、囊胞状リンパ管腫と診断した。

術後経過は良好であり、術後8日目で退院した。

## II 考察

リンパ管腫は構成するリンパ管の大きさと形によって、海綿状リンパ管腫と囊胞状リンパ管腫に分けられる。囊胞状リンパ管腫は、囊状に拡張したリンパ管からなり、内腔はリンパ液で満たされる。発育は緩徐であるが、リンパ液の貯留により大きな囊胞となりうる<sup>1)</sup>。リンパ管腫の組織学的診断基準として、1) 囊胞内の内皮は立方状、円柱状上皮よりも扁平な内皮で覆われる、2) 囊胞壁に小リンパ腔が存在する、3) 囊胞壁にリンパ球の集簇がある、4) 脂質を含んだ泡沫細胞が存在する、5) 囊胞壁に平滑筋が存在する、の5項目が挙げられる<sup>2)</sup>。本症例はこの5つをすべて満たしていた。また、本例はCD31、リンパ管のマーカーであるD2-40がいずれも陽性であり、リンパ管腫と診断した。Chungらは、リンパ管腫の内皮細胞は、高率に第VIII因子関連抗原が陽性であると報告している<sup>3)</sup>が、本腫瘍も第VIII因子関連抗原は陽性であった。

囊胞状リンパ管腫は多くは乳児期に発見され、頭頸部、腋窩などに好発するとされている。しかし、稀に縦隔や腹腔内、後腹膜腔などに発生することがあり、それらは気付かれずに成人期にて発見される場合がある。腸間膜囊胞状リンパ管腫の頻度としては、入院患者において、およそ20,000~250,000人に1人の割合との報告がある<sup>14)</sup>。藤川ら<sup>4)</sup>は1990年か

ら2006年までの成人での腸間膜リンパ管腫の症例を57例集計しており、症状として腹痛が最も多く、約半数を占めると述べている。本症例も腹痛と発熱が発見の契機となっている。その他の症状としては腫瘍触知、腹部膨満などが主訴として認められているが、本疾患に特徴的な症状はないとされる。腫瘍による腸閉塞や腸軸捻転を認めた報告もあるが<sup>5, 6)</sup>、特徴的な症状が乏しい稀な疾患であるため、本疾患を念頭におかないと術前の診断は困難であると思われる。

一方、画像診断法の進歩により、術前に診断しえた報告例は増えている。本疾患の画像所見としては、内部に隔壁を有する多房性嚢胞性腫瘍像が特徴的である。超音波検査は隔壁構造を最もよく描出し、診断に有用であるとされるが、本症例では、比較的小さい嚢胞が集簇して腫瘍を形成しており、腹部超音波検査上は内部エコーが不均一となり、明らかな隔壁構造は描出しえなかったと考えられる。

腹部CT上の嚢胞状リンパ管腫の特徴は、単純で隔壁を有する辺縁平滑・境界明瞭な嚢胞で、嚢胞内出血が生じれば、内部はfluid-blood levelとなる<sup>7)</sup>。MRIにおける嚢胞状リンパ管腫の特徴像は、T1強調像で低信号、T2強調像で著明な高信号を呈する。脂肪、血液などの嚢胞内容物の違いにより、T1、T2強調像とも高信号となりうる<sup>8)</sup>。MRIは嚢胞や隔壁構造などを精密に示すことができ、他の疾患との鑑別に有用である<sup>9)</sup>。本症例の腫瘍は、CTやMRIにて隔壁構造がよく描出されていたが、病理組織学的所見で明らかになった嚢胞内出血は、術前のCT・MRIでは診断しえなかった。軽度の嚢胞内出血であれば、画像に反映されないのかもしれない。腹腔内の嚢胞性腫瘍の鑑別疾患としては、重複腸管嚢胞、奇形腫、卵巣腫瘍、良性多嚢胞性中皮腫などがあげられる。重複腸管嚢胞は単房性であることが多く、奇形腫は内部に脂肪、石灰化、軟部組織の成分が混在しており、CT、MRIでこのような所見が得られることから鑑別が可能と考えられる。良性多嚢胞性中皮腫は、CT・MRIでは嚢胞状リンパ管腫と同様の所見を呈することが多く、画像上では本疾患との鑑別が困難であるかもしれない<sup>12, 13)</sup>。しかし、良性多発性中皮腫は、生殖期にある女性に多く認められることから、本例においては否定的であると考えられる。

本例は術前にFDG-PET検査を施行し、他の部位

への異常集積は認められず、単発性病変であると診断した。またFDGの集積は軽度であり、良性腫瘍の可能性が高いと考えた。しかし、本例は5 cmを超える腹腔内腫瘍であり、悪性腫瘍の可能性も否定できず、他の疾患との鑑別も含めて外科的切除を施行した。腸間膜リンパ管腫の治療法としては、良性腫瘍ではあるものの増大傾向を示し、二次感染や周囲臓器の圧迫などの症状を起こすことが多く、外科切除が標準的治療となる。本疾患の予後は極めて良好であり、完全切除を行えば再発はまれであるが、不完全切除となれば数年後に再発しうる<sup>10)</sup>。本症例は腸管膜根部に存在したが、腸管合併切除せずに完全に摘出された。近年では腹腔鏡下手術により切除する症例も見られるが<sup>11)</sup>、再発を予防するためには完全に摘出することが重要である。

## 結 語

成人では比較的まれな疾患である腸間膜嚢胞状リンパ管腫の1例を報告した。腹腔内の嚢胞性腫瘍の鑑別診断では本疾患も考慮すべきである。本疾患は良性腫瘍ではあるものの増大し、感染や腸閉塞、腸軸捻転などの症状をきたす場合がある。外科的切除が標準治療であり、再発を予防するためには完全に摘出することが重要である。

## 引用文献

- 1) 岩崎 宏. 病理学. 居石克夫, 恒吉正澄編, 第6版, 医学書院, 東京, 1995, 844.
- 2) Takiff H, Calabria R, Yin L, Stabile BE. Mesenteric cysts and intra-abdominal cystic lymphangiomas. *Arch Surg* 1985; **120**: 1266-1269.
- 3) Chung JH, Suh YL, Park IA, Jang JJ, Chi JG, Kim YI, Kim WH. A pathologic study of abdominal lymphangiomas. *J Korean Med Sci* 1999; **14**: 257-262.
- 4) 藤川幸一, 高森 繁, 渡辺英二郎, 鈴木 隆, 清水義明, 宍倉有里. 成人腸間膜リンパ管腫の1切除例. *日消外会誌* 2007; **40**: 1706-1710.
- 5) Prabhakaran K, Patankar JZ, Loh DL, Ahamed Faiz Ali MA. Cystic lymphangioma

- of the mesentery causing intestinal obstruction. *Singapore Med J* 2007 ; **48** : 265-267.
- 6) 鈴木 真, 松岡 伸, 大瀨真男, 長谷部伸, 山田盛久, 滝沢謙治, 國安芳夫, 真田 裕, 吉澤康男, 山田耕一郎, 磯山恵一. 小腸軸捻転を生じた腸間膜嚢腫の1例. *日小児放線会誌* 1994 ; **10** : 146-147.
- 7) 津田晋二, 林 邦昭, 松永尚文, 柳 忠道, 酒井 敦, 松岡陽治郎, 森川 実. 小児嚢胞状リンパ管腫の画像診断. *日小児放線会誌* 1990 ; **6** : 213-214.
- 8) Yoo E, Kim MJ, Kim KW, Chung JJ, Kim SH, Choi JY. A case of mesenteric cystic lymphangioma : Fat saturation and chemical shift MR imaging. *J Magn Reson Imaging* 2006 ; **23** : 77-80.
- 9) Su CM, Yu MC, Chen HY, Tseng JH, Jang YY, Chen MF. Single-centre results of treatment of retroperitoneal and mesenteric cystic lymphangiomas. *Dig Surg* 2007 ; **24** : 181-185.
- 10) Singh S, Maghrabi M. Small bowel obstruction caused by recurrent cystic lymphangioma. *Br J Surg* 1993 ; **80** ; 1012.
- 11) 佐野 純, 山田 誠, 梅本敬夫. 腹腔鏡下に摘出した成人腸間膜乳び嚢胞の1例. *日内視鏡外会誌* 2001 ; **6** : 569-574.
- 12) Safioleas MC, Constantinos K, Michael S, Konstantinos G, Constantinos S, Alkiviadis K. Benign multicystic peritoneal mesothelioma : a case report and review of the literature. *World J Gastroenterol* 2006 ; **12** ; 5739-5742.
- 13) Tangjitgamol S, Erlichman J, Northrup H, Malpica A, Wang X, Lee E, Kavanagh JJ. Benign multicystic peritoneal mesothelioma: cases reports in the family with diverticulosis and literature review. *Int J Gynecol Cancer* 2005 ; **15** : 1101-1107.
- 14) Kurtz MD, Heimann TM, Beck AR, Holt J. Mesenteric and retroperitoneal cysts. *Ann Surg* 1986 ; **203** : 109-112.

## A Case of Adult Cystic Lymphangioma of the Small Bowel Mesentery

Shu KIYOTOKI, Jun NISHIKAWA, Keiko FUJIWARA, Mari SAITO,  
Kouichi HAMABE, Takeshi OKAMOTO, Shingo HIGAKI<sup>1)</sup>,  
Yoshihiro TOKUHISA<sup>2)</sup>, Toshikazu GONDO<sup>3)</sup>, Masaaki OKA<sup>2)</sup> and Isao SAKAIDA

*Department of Internal Medicine I. and Molecular Science & Applied Medicine, Yamaguchi University  
School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan*

*1) Department of Gastroenterological Endoscopy, Yamaguchi University Hospital, 1-1-1 Minami  
Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan*

*2) Department of Surgery II. and Molecular Science & Applied Medicine, Yamaguchi University  
School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan*

*3) Department of Pathology, Yamaguchi University Hospital, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi  
755-8505, Japan*

### SUMMARY

We report a rare case of adult cystic lymphangioma of the small bowel mesentery. The patient was a 46-year-old man who presented epigastralgia and fever ; CT scan revealed a mass near the tail of the pancreas, and he was referred to our hospital for further examination. CT images obtained subsequently revealed a 50-mm cystic mass with low attenuation in the root of the mesentery of small intestine, and it seemed to be separated from the bowel loops. The wall of the cystic mass showed enhancement after contrast injection. The mass showed low signal intensity in T1-weighted MR images and high signal intensity in T2-weighted MR images. FDG-PET images revealed slight FDG uptake in the lesion. Double-balloon endoscopy showed no lesions in the lumen of the intestine. The mesenteric tumor was resected at laparotomy and histologically diagnosed as cystic lymphangioma.