

臨床報告

3カ月乳児に腸閉塞を呈した小腸腸間膜海綿状リンパ管腫の1例

白井中央病院 外科

康 錫 柱・笠 井 恵

東京女子医科大学 第二外科学教室（主任：織畑秀夫教授）

ハブ ヨウイチ ホシノ コウジ ムラセ シゲル
土生 洋一・星野 光治・村瀬 茂講師 スズキ タダシ クラミツ ヒデ マロ オリハタ ヒデオ
鈴木 忠・助教授 倉光 秀 磨・教授 織畑 秀夫

（受付 昭和61年2月12日）

はじめに

腸間膜囊腫は比較的稀な疾患であり、小児に多く発症するが、1歳以下は極めて稀とされその報告も少ない。最近われわれは、3カ月の乳児に腸閉塞として発症した、小腸腸間膜リンパ管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：生後3カ月13日，女児。

妊娠歴および家族歴：特に異常を認めない。

既往歴：在胎40週，帝王切開，生下時体重3,200g，その他に異常を認めない。

現病歴：生後3カ月6日目ごろより軽度の下痢症状が出現，徐々に嘔気，嘔吐も伴ってきたため，近医を受診し制吐剤の投与を受けるも軽快せず，発熱，嘔吐頻回となったため，当院へ紹介され入院となる。

入院時所見：体温37.4℃，脈拍138・整，体重5.8kg，皮膚乾燥著明，腹部軽度膨隆を認めた。

入院時検査所見：血液検査では，血清K値に軽度上昇を認める以外，異常がなかった（表1）。

腹部単純X線写真：立位像に，拡張した腸管内ガス像と鏡面像を認めた（写真1）。

注腸造影所見：腸重積症を疑い注腸を施行したが，直腸から回盲部までの腸管には狭窄や閉塞所

表1 入院時検査所見

末梢血		血液生化学	
WBC	7200 /mm	GOT	12 U
RBC	419×10 /mm	GPT	6 U
Hb.	11.9 g/dl	AI-P	16.1 U
Ht.	37.0 %	LDH	519 U
Pl.	30.8×10 /mm	T.Pr	5.4 mg/dl
No.	141 mEq/l	BUN	15.0 mg/dl
K	5.5 mEq/l	Cr.	0.6 mg/dl
Cl	94 mEq/l	CRP	(-)
検尿所見			
異常なし			

見を認めなかった。

以上の臨床症状および検査所見により，上部消化管閉塞または腸管回転異常症による腸閉塞を疑い，緊急開腹術を施行した。

手術所見：上腹部横切開で開腹。Treitz 靭帯より60cm 肛側，小腸腸間膜に嚢胞状の腫瘤があり，この部位で腸管が時計回りに約180度捻転し腸閉塞をきたしていた。捻転を解除し，腸管への浸潤は認められなかったため，嚢腫のみを摘出した後開腹した（写真3）。

摘出標本肉眼所見：嚢腫の大きさは5×3×3cm，表面ほぼ平滑，乳白色で，その内容液は15cc，乳ビ様であった（写真4，5）。

Seuk Joo KANG, Megumi KASAI [Department of Surgery, Shiroy Central Hospital], Youichi HABU, Kouji HOSHINO, Shigeru MURASE, Tadashi SUZUKI, Hidemaro KURAMITSU, Hideo ORIHATA (Department of 2nd Surgery [Director: Prof. Hideo ORIHATA], Tokyo Women's Medical College): Intestinal volvulus caused by cavernous lymphangioma in a three-month-old female infant.

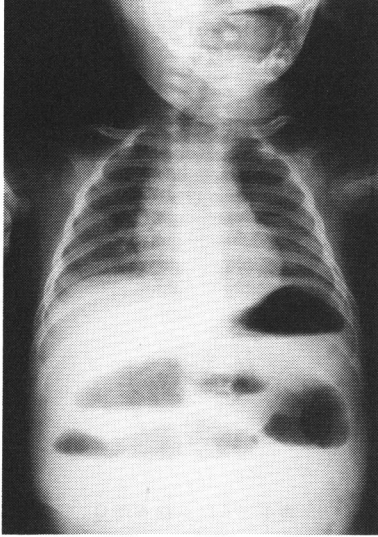


写真1 腹部単純X線写真（立位像）

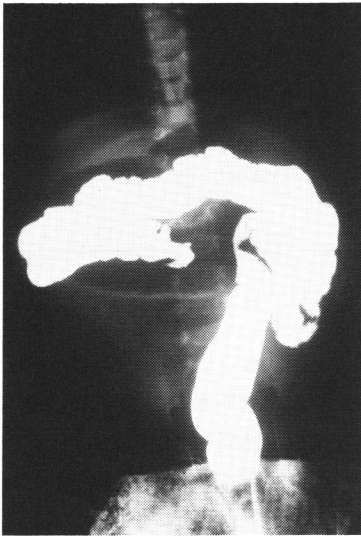


写真2 注腸造影写真

摘出標本病理組織学的所見：嚢胞壁は、酸性ムコ多糖類を含む線維性結合織よりなり、内面には少数の紡錘型細胞が点在する。その周辺に大小の拡張した cystic な管腔があり、単層の内皮でおおわれている。内腔には、軽度好酸性の無構造な液体と少数のリンパ球、lipophageと思われる foamy macrophage が認められる(写真6)。以上の所見より、Cavernous lymphangioma と診断された。

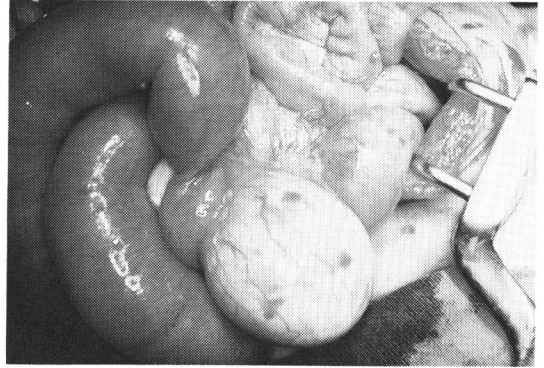


写真3 術中所見一捻転絞られた腸管と腫瘤を示す一

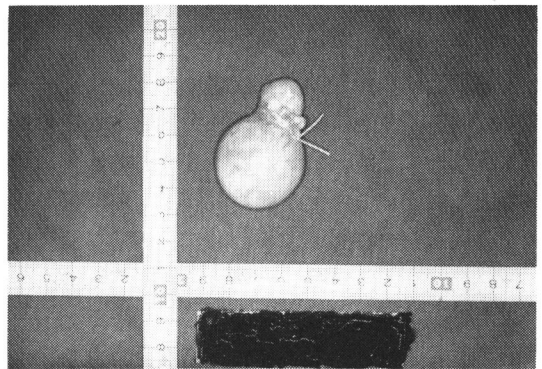


写真4 摘出標本肉眼的所見

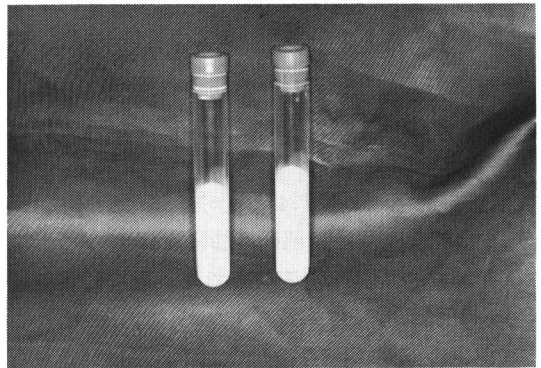


写真5 嚢腫内容液

術後経過：術後1年を経過し、再発の徴候もなく順調に発育している。

考 察

腸間膜嚢腫の発生頻度は3～25万人に1人の割とされ¹⁾、男性よりも女性にやや多く、半数以上が

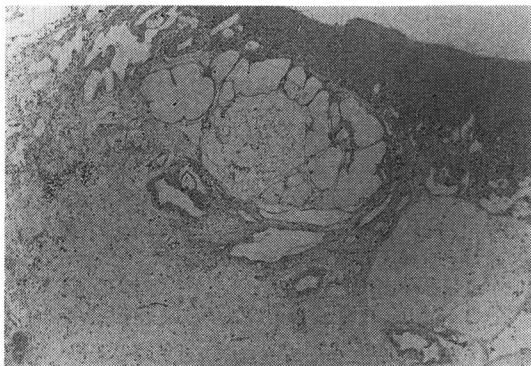


写真6 病理組織像 (HE 染色×10)

小児例で1歳以下は極めて少ない。本邦の集計では、伊藤²⁾の報告以来、1980年までに282例が報告されているが³⁾、乳児の腸間膜囊腫例では、西田⁴⁾の10年間の集計によれば73例中5例(6.9%)を数えるにすぎない。

発生部位は、十二指腸下降脚から直腸に至るあらゆる部位に発生する⁵⁾が、半数近くが小腸腸間膜に発生する⁵⁾。本症の分類には、Neukirch⁶⁾、Bearhs⁷⁾、Peterson⁸⁾の分類があるが、Bearhs⁷⁾の分類が現在でも広く受けいられている(表2)。

今回の症例のリンパ管腫は、リンパ管の増殖に伴なって発生してくる良性腫瘍であり、出生当時から存在するものが多く、その組織学的分類に関してはその内部構造により、

- 1) 単純性：毛細管状のリンパ管腔よりなるもの
- 2) 海綿状：軽度拡張したリンパ管腔よりなるもの
- 3) 嚢胞状：大きな嚢胞状のリンパ管腔よりなるもの

以上の3型に分類されている⁹⁾。

臨床症状は多彩であり、腫瘤触知、嚢腫の増大による腹痛、尿路系の閉塞等が多いが、腸閉塞、腸軸捻症、出血、破裂などの、嚢腫が存在することから引き起こされる合併症に関係して出現することが多い。腫瘤の触知について Warfield¹⁰⁾は、腫瘤の可動性、特に左右への可動性が認められる場合、腸間膜嚢腫が強く示唆されるとしている。

表2 Classification of mesenteric cysts [Bearhs, 1950]

-
- A. Embryonic and developmental cysts
 - 1) Enteric
 - 2) Urogenital
 - 3) Lymphoid
 - 4) Dermoid
 - 5) Embryonic defects in early formation lymphatic vessels, lymphnodes, etc
 - B. Traumatic or acquired cysts (cyst wall composed of fibrous tissue without a lining membrane)
 - 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
 - a) Hyperplastic lymphatic vessels resorting in lymphangiomata
 - 2) Malignant cysts
 - a) Lymphangioendothelioma
 - D. Infective and degenerative cysts
 - 1) Mycotic
 - 2) Parasitic
 - 3) Tuberculous
 - 4) Cystic degeneration of lymphnodes and other tissues
-

術前診断は、本症が特徴的の症状に乏しく、比較的稀なことから極めて困難であり、他の疾患と誤診されて開腹術が施行されることが多い。間接所見として、消化管造影、経静脈腎盂造影が有用とされ、外からの圧排所見が認められることがあるが、嚢腫が小さければ所見が得られず、腫瘤の性状も判別できないことが多い。最近では、腹部腫瘤に対する画像診断が主流となり、腹部CTスキャンや超音波検査が積極的に施行されるようになったため、診断率がかなり向上してきた。CTでは、腸間膜の2枚の腹膜の空隙を嚢腫が両側からはさまれるように発育することから、その断層像において、嚢腫と腹膜とがサンドイッチ状を呈するといわれる。(Sandwich Sign)¹¹⁾また、超音波検査では、腫瘤内腔は均一な低エコーレベルを示し、その背側の一部分が高エコー像を示すといわれている。また、McQuwon¹²⁾は、単純性および海綿状リンパ管腫は複雑な高エコー像を示すと述べて

ているが、未だ十分には解明されておらず、海綿状リンパ管腫の超音波検査所見については今後の検討を待たねばならない。腹部血管造影では、主要血管の圧排、伸展像や囊腫の feeder が造影されることがあるが、囊腫自体は avascular である。

鑑別を要する疾患としては、大網嚢胞、卵巣嚢胞、膵嚢胞、脾嚢胞、胆嚢水腫、後腹膜嚢胞、水腎症および脾腫などが挙げられる。

治療は、原則として囊腫の完全摘出である。腸管への浸潤が認められる場合には、腸管の合併切除も必要であり、本症の26.3%に腸切除が施行されたとの報告もある¹³⁾。囊腫が完全に除去されれば、本症の予後は一般的に良好であるが、Walker¹⁴⁾は7%に囊腫の再発がみられたと報告しており、術後も経過観察が必要である。

まとめ

われわれは、3カ月の乳児に腸閉塞として発症した、小腸腸間膜海綿状リンパ管腫の一例を経験し治癒することができたので、若干の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) **Hardin, W.J. and Hardy, J.D.:** Mesenteric cyst. *Am J Surg* 119 640 (1970)
- 2) **伊藤隼三・ほか:** 腸間膜嚢腫—就テ. *東京医学会誌* 8 1003 (1895)
- 3) **可児淳郎・ほか:** 嚢腫内出血を呈した小児腸間膜嚢腫の1例. *日小外会誌* 16 1247~1251 (1980)
- 4) **西田 進・ほか:** 小児腸間膜嚢腫—自験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)
- 5) **樋口悦美・ほか:** 腸間膜嚢腫の1例. *小児科臨床* 37(2) 321~324 ((1984)
- 6) **Neukirch:** Zysten und Pseudozysten des Mesenteriums. *Arch Klin Chir* 161 730 (1930)
- 7) **Behrs, H., et al.:** Chylous cysts of the abdomen. *Surg Clin north Am* 30 1081 (1950)
- 8) **Peterson, E.W.:** Cysts of mesentery. *Ann Surg* 112 80 (1940)
- 9) **Landing, B.H., et al.:** Tumor of the cardiovascularsystem. In *Atlas of Tumor pathology*. Washington, D.C.: Armed Forces Institute of Pathology, Sect, 3, fasc, 7 pp124 (1956)
- 10) **Warfield, J.Q.:** A study of mesenteric cysts with a report of two recent cases. *Ann Surg* 96 329 (1932)
- 11) **Mueller, P.R., et al.:** Appearance of lymphomatous involvement of the mesentery by ultrasonography and body computed tomography. *Radiology* 134 467~473 (1980)
- 12) **McQuwon, D.S., et al.:** Abdominal cystic lymphangiomas. Report of a case involving the liver and spleen and illustration of two cases with origin in the greater omentum and root of the mesentery. *J Clin Ultrasound* 3 291~296 (1975)
- 13) **山本 宏・ほか:** 急性腹症にて発症し術前に診断された腸間膜嚢腫の1治験例. *日消誌* 81(8) 1842~1847 (1984)
- 14) **Walker, A. and Putman, P.:** Omental, mesenteric and retroperitoneal cysts: A clinical study of thirty-three cases. *Ann Surg* 178 13~19 (1973)