

妊娠中に発見された 巨大嚢胞状胃リンパ管腫の1例

谷野智将[†] 前島新史 村田有也 波多野まみ
白石淳一 大野暁子* 近藤崇之** 川口義樹**

IRYO Vol. 72 No. 7 (321-325) 2018

要 旨

症例は20歳代女性。妊娠6週時に近医産婦人科を受診した時、超音波検査にて腹腔内に巨大な多房性嚢胞を指摘され国立病院機構東京医療センター（当院）を受診した。手術により切除された病巣は16×14×4.5 cm 大の巨大な多房性嚢胞状腫瘍で、病理組織学的には胃壁から発生した外方発育性のリンパ管腫であった。本症例は妊娠を契機として発見された嚢胞状胃リンパ管腫である。リンパ管腫の発生原因についてはまだはっきりとしたことはわかっていないが、リンパ管の過誤腫のような増殖による変化あるいはリンパ流のうっ滞による変化の結果生じるものと考えられている¹⁾。本症例は前回の妊娠・出産という子宮の腫大等による循環動態の変化、ならびに今回の妊娠による循環動態の変化が発生に起因した可能性が考えられる²⁾。

今回の症例は完全切除を目指す胃全摘を行わなくてはいけない可能性があったが、妊娠中ということもあり、診断目的としての腫瘍単純切除に処置をとどめた。

巨大な多房性嚢胞状胃リンパ管腫はまれな疾患であるが、若干の文献的考察を加えて報告を行う。

キーワード 嚢胞状胃リンパ管腫, 胃, 妊娠

はじめに

リンパ管腫は基本的には小児でみられる疾患である。80%以上は5歳より前に発見されるが、残りは40歳までにみつけられることが多いとされており、成人例で発見されることもある³⁾⁴⁾。発生部位は75%が頸部、20%が腋窩、その他5%が縦隔、骨盤、腹

部などである⁵⁾。胃での発生例も少数ながら報告されているが、漿膜下の大きな多房性腫瘍は医学中央雑誌で「胃」「リンパ管腫」のキーワードを用いて検索した限りでは4例⁶⁾⁻⁹⁾しかみられず、リンパ管腫の中でもかなりまれな例と考えられる。今回、われわれはこのまれな疾患を経験したので報告する。

国立病院機構東京医療センター 臨床検査科, *産婦人科, **外科 †医師
著者連絡先: 谷野智将 国立病院機構東京医療センター 臨床検査科 〒152-8902 東京都目黒区東が丘2-5-1
e-mail: ttanino@ntmc-hosp.jp

(平成29年12月9日受付, 平成30年4月13日受理)

A Case of Massive Cystic Gastric Lymphangioma discovered during Pregnancy

Tomoyuki Tanino, Arafumi Maeshima, Yuya Murata, Mami Hatano, Junichi Shiraiishi, Akiko Ohno*, Takayuki Kondo** and Yoshiaki Kawaguchi**, NHO Tokyo Medical Center, Department of Clinical Laboratory, *NHO Tokyo Medical Center, Department of Gynecology, **NHO Tokyo Medical Center, Department of Surgery

(Received Dec. 9, 2017, Accepted Apr. 13, 2018)

Key Words: cystic gastric lymphangioma, stomach, pregnancy

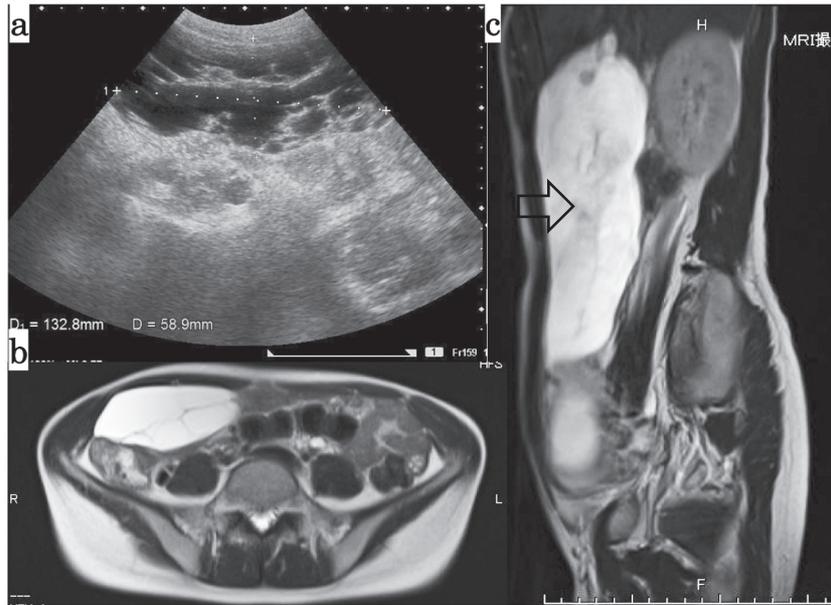


図1 a 術前経腹部超音波, b 術前 MRI 冠状断像, c 術前 MRI 体軸断面像 (L5~S1 領域)

a. 経腹超音波像. 132×58mm の多嚢胞性病変を認めた.

b, c. 単純 MRI T2強調像. 19.5×14.7×5.2cm 大の病変を認めた.

症 例

症例：27歳. 女性.

既往歴：1 経妊 1 経産 (24歳時). その他には特記すべき事項なし.

現病歴：

市販の妊娠検査薬で妊娠反応陽性を呈したので、近医産婦人科を受診。妊娠 6-7 週相当と判明した。その際、腹部超音波検査を施行したところ腹腔内に 15.5×7 cm 大の多房性嚢胞が見つかった。卵巢腫瘍が疑われ、卵巢腫瘍合併妊娠として国立病院機構東京医療センター (当院) を妊娠 8 週時に紹介受診した。その後、当院にて経過観察を行うこととなった。経過中、腫瘍の増大傾向はみられなかった。捻転や破裂する可能性があることと悪性の可能性を完全には否定しきれないことから、妊娠 17 週時に開腹手術が行われた。

入院時身体所見：

身長 161.6 cm, 体重 46.3 kg. 内診で右付属器領域に手拳大腫瘍触知した。その他には特記すべき事項なし。

入院時検査所見：

血液生化学検査では特別な異常は指摘されなかった。腫瘍マーカーは測定していない。

経腹部超音波検査：

13.2×5.8 cm 大の多房性の嚢胞性病変を認めた

(図 1 a).

腹部 MRI 検査：

子宮右頭側に 19.5×14.7×5.2 cm 大の多房性嚢胞性腫瘍がみられた。内部信号は T1 WI では筋肉より高信号で脂肪抑制効果はみられず、T2 WI では大半筋肉より高信号だが一部で淡い高信号から等信号ないしやや低信号を呈する房もみられ、内容物は血性あるいは蛋白濃度の高い液体であることが疑われた (図 1 b, c)。積極的に悪性を疑わせるような拡散制限をともなった充実性部分は確認されなかった。病変は上腹部から骨盤腔内にわたる広い範囲でみられ、一部は胃小彎側の壁にも接していたが画像上からは病変の主座の指摘は困難であった。嚢胞病変は胃壁を含む周囲組織との境界は比較的明瞭であり、周囲臓器への進展は画像上からは積極的に示唆されなかった。

手術所見：

臍下 10 cm を切開し開腹したところ、大網下に大網に包まれるように暗赤色の多数の小嚢胞癒合状の巨大腫瘍がみられた (図 2 a)。両側の卵巢・卵管には異常所見はみられなかった。術中観察所見で当初予想していた両側卵巢・卵管発生ではなく上腹部に病変の主座があることが疑われ、十分な視野の確保も必要とされたことから臍部から頭側に 20 cm 切開を加えて腫瘍の観察を進めていったところ、網嚢内から連続する形で茎状にくびれたポリープ状の

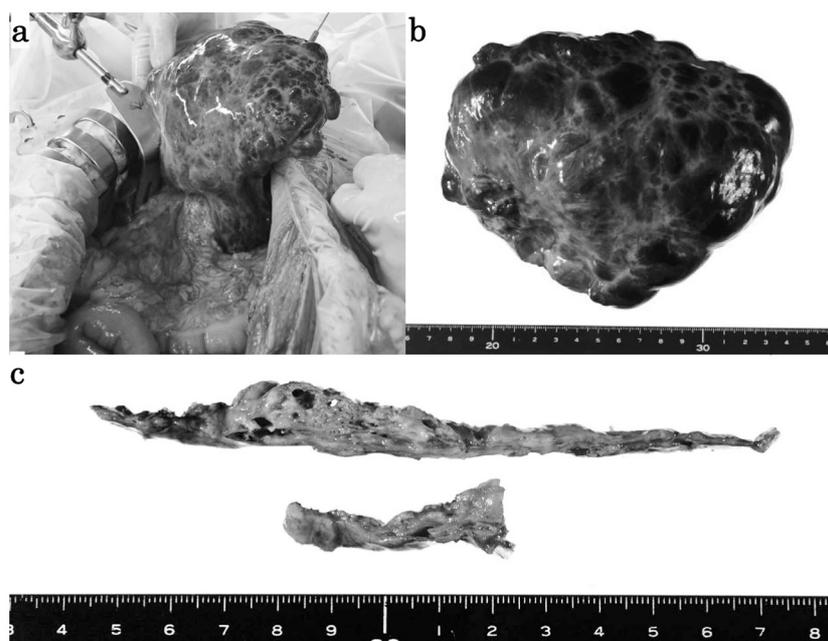


図2 a 腫瘍の手術中肉眼像, b 固定前提出検体像, c 固定後提出検体像

- a. 手術中肉眼所見. 胃壁の一部に連続する茎を有する腫瘍がみられた.
 b. 固定前肉眼像. 多房性の黒赤色の腫瘍状病変を認めた.
 c. 固定後肉眼割面像. 中小の囊胞状構築が多数確認された. ホルマリン固定時に内容を抜いたため各囊胞腔が萎んでおり, 固定前より薄板状となっている.

形状を呈していた. 右横隔膜脚や小網を開放し, さらに観察をすすめたところ腫瘍は胃体部後壁に広く連続しており, 胃小彎側, 噴門側まで及んでいた. 胃体部前壁も通常の漿膜と比較して, やや黄色が強い変化を呈する部分も認めた. 胃体部後壁より小彎側, 噴門側と癒着範囲が広くすべてを摘出するためには胃全摘を行わなくてはならないため, 今回は診断目的として網嚢部の茎状にくびれた部分から腫瘍を部分切除し, 手術を終了した.

肉眼所見:

肉眼的には約16×14×4.5 cm大の黒色調から暗赤色調の多房性囊胞性病変を認めた(図2b, c). 切除病変の重量は670 gであった. 内容物は漿液性であり, 液体の色調は淡赤色であった.

組織学的所見:

組織学的には脈管と考えられる大小の空隙が集簇性に多数認められ, 間に成熟脂肪組織, 膠原線維が介在していた(図3a). 脈管の内腔には単層性に内皮細胞がみられたが, 内皮細胞の核に多形性はみられず, 核分裂像は40倍強拡大50視野中0個であった.(図3b), 大口径の脈管では壁内に平滑筋成分がみられた(図3c). これらの脈管の内皮細胞は免疫染色にてD2-40(図3d)とCD31に陽性を示した.

CD34の免疫染色は陰性, もしくは明らかな血管内皮細胞成分にくらべて弱い陽性像が認められた. Ki-67 labeling indexは1%未満であった. HMB-45の免疫染色では, 構成する間質の細胞に陽性所見は認められなかった. 以上の所見から, 増生している脈管はリンパ管と考えられ, 肉眼的形態と合わせて囊胞状リンパ管腫と診断した.

術後経過:

術後経過は母子ともに良好であり, 妊娠も継続している. 当院で引き続き経過を追って観察中である.

考 察

本症例は妊娠を契機として発見された囊胞状胃リンパ管腫である. リンパ管腫の発生原因についてはまだはっきりとしたことはわかっていないが, リンパ管の過誤腫のような増殖による変化あるいはリンパ流のうっ滞による変化の結果生じるものと考えられている¹⁾. 本症例は前回の妊娠・出産という子宮の腫大等による循環動態の変化, ならびに今回の妊娠による循環動態の変化が発生に起因した可能性が考えられる²⁾.

リンパ管腫の診断は, 脈管が増生する顕微鏡所見

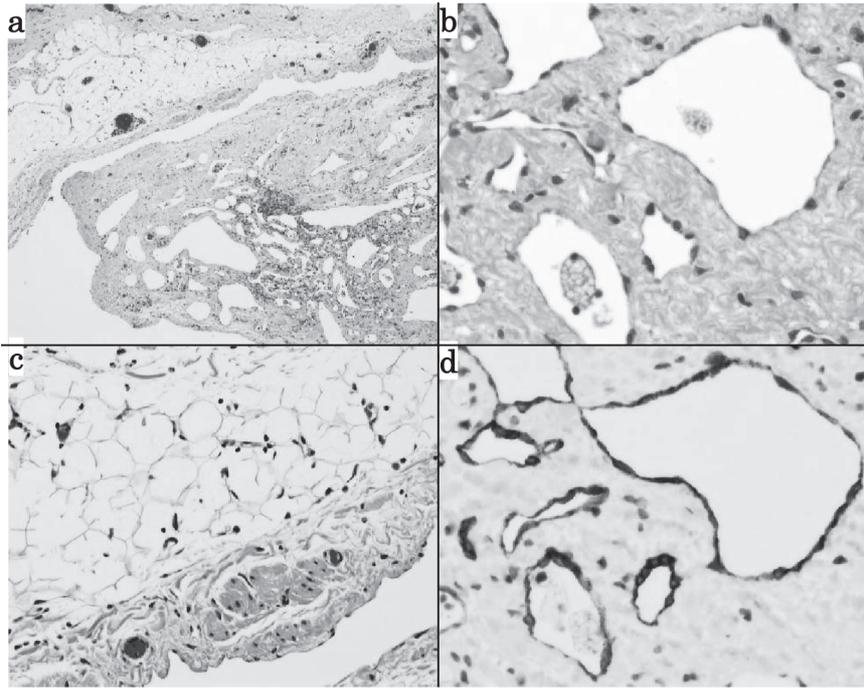


図3 腫瘍の代表的な HE 像 (a~c) と免疫染色像 (d)

- 顕微鏡 Hematoxylin Eosin (HE) 染色像 (対物×2). 大小さまざまな脈管構造と脂肪組織が確認された.
- HE 染色像 (対物×40). 脈管の強拡大像で, 扁平で異型に乏しい内皮が内腔面に単層に覆っていた.
- HE 染色像 (対物×20). 太い脈管壁には平滑筋組織がみられた. 周囲には成熟脂肪組織が介在していた.
- D2-40免疫染色像 (対物×40). 脈管の内皮細胞に陽性像が確認された.

ならびに D2-40 や CD31 といったリンパ管内皮マーカー陽性から確定しえた. 類似した組織像を呈する疾患として血管腫が鑑別として考えられたが, 免疫染色にて内皮細胞は CD34 や Factor VIII といった血管内皮マーカー陰性であり, 血管腫は否定された.

リンパ管腫の治療は切除のみでよいとされているが, 不完全切除例では 6-40% で再発することから, 部分切除ではなく完全な切除が望まれる¹⁰⁾. その他にも嚢胞穿刺やレーザー照射療法等も試みられることがあるが, 再発率は 40% と高く, 良好な成績とはいえない¹⁰⁾. 再発期間は術後 1 年以内が 60%, 3 年以内に 80% である¹⁰⁾. 生命予後だが, リンパ管腫自体は良性疾患であり悪性転化は指摘されていない. そのため生命予後は良好とされているが, 頸部に発生したリンパ管腫が気道閉塞をした場合や腹腔内に発生したリンパ管腫が消化管運動障害を生じた場合, リンパ管腫内で感染が生じた場合などにより生命予後に影響を与えることはある¹⁰⁾. Alqahtani らは 186 例の小児患者を後ろ向き研究により 25 年間追跡調査を行っているが, うち 10 代と生後 5 週の 2 例が死亡

している. 死因は 10 代の例はリンパ管腫の感染であり, もう 1 例の 5 週の子はリンパ管腫が原因とされる臓器発達障害とされている¹⁰⁾.

今回の症例は完全切除を目指す胃全摘を行わなくてはならない可能性があったが, 妊娠中ということもあり, 診断目的としての腫瘍単純切除に処置をとどめた. 捻転の予防や悪性腫瘍の否定が行えたという点で今回の処置は適切であったと考えるが, 腫瘍の一部がまだ残存しているため再増生する可能性が残っている. 追加治療として腫瘍の完全切除術も選択肢に挙げられるため, 今後も慎重な経過観察が必要である. 胃切除を行うかどうかは, 出産後に患者と相談して行うべきだが, 仮に行わないとした場合, 術後再発率は 1 年以内が 60%, 3 年以内が 80% とのことより, 1-3 年程度の経過観察は必要と思われる¹⁰⁾.

結 語

われわれはまれな胃原発の巨大な多房性嚢胞性リ

ンパ管腫を経験したので、その概要を報告するとともに、若干の文献的考察を加えて報告した。

著者の利益相反：本論文発表内容に関連して申告なし。

[文献]

- 1) Wiegand S, Eivazi B, Barth PJ, et al. Pathogenesis of lymphangiomas. *Virchows Arch* 2008 ; 453 : 1-8.
- 2) 児玉由紀, 鮫島 浩, 池ノ上克. 妊娠に伴う生理学的変化, 循環動態の変化. *ペリネイタルケア* 1998 ; 17 : 75-80.
- 3) Kurtz RJ, Heimann TM, Holt J et al. Mesenteric and retroperitoneal cysts. *Ann Surg* 1986 ; 203 : 109-12.
- 4) Hancock BJ, St-Vil D, Luks FI et al. Complications of lymphangiomas in children. *J Pediatr Surg* 1992 ; 27 : 220-6.
- 5) Levy AD, Cantisani V, Miettinen M et al. Abdominal lymphangiomas: imaging features with pathologic correlation. *Am J Roentgenol* 2004 ; 182 : 1485-91.
- 6) 島 功, 太田節子, 池野暢子. 術前卵巣嚢腫と鑑別困難であった胃原発巨大嚢状リンパ管腫の1例. *産と婦* 1982 ; 49 : 1641-5.
- 7) 伊藤哲哉, 青木浩一, 森 尚秀ほか. 巨大な多胞性嚢胞状胃リンパ管腫の1例. *日臨外会誌* 2009 ; 70 : 2677-81.
- 8) 大場信之, 荒井俊夫, 殿塚亮祐ほか. 消化管出血を契機に発見された巨大胃リンパ管腫の1例. *Prog Dig Endosc* 2009 ; 75(2) : 74-5.
- 9) 鈴木優美, 村瀬成彦, 平松聖史ほか. 腹痛・発熱で発見し単孔式腹腔鏡下に切除した小児胃リンパ管奇形の1例. *日臨外会誌* 2016 ; 77 : 1078-82.
- 10) Alqahtani A, Nguyen LT, Flageole H et al. 25 years' experience with lymphangiomas in children. *J Pediatr Surg* 1999 ; 34 : 1164-8.