

症例報告

膵海綿状リンパ管腫 (cavernous lymphangioma of the pancreas) に対して腹腔鏡下腫瘍摘出術を行った 1 例

八木 淑之, 藤野 良三, 高井 茂治, 三木 仁司, 住友 正幸,
松山 和男, 尾形 頼彦, 中川 靖士, 金村 晋史, 兼田 裕司,
黒部 裕嗣

徳島県立中央病院外科

(平成15年3月14日受付)

(平成15年3月24日受理)

極めて稀な膵非上皮性腫瘍である膵海綿状リンパ管腫 (cavernous lymphangioma of the pancreas) に対して腹腔鏡下腫瘍摘出術を施行し得た症例を経験したので報告する。

症例は49歳男性で, 人間ドックで膵体尾部腫瘍を指摘されるも, 腹痛などの症状はなかった。経過観察中に腫瘍の増大傾向を認めたため, 腹腔鏡下腫瘍摘出術を施行した。摘出された腫瘍は7.0×5.5×3.0cmの, 多房性腫瘍であった。悪性所見は認めず, 膵海綿状リンパ管腫と診断された。術後経過は良好であった。術後4年の現在, 再発なく無症状で経過している。

膵海綿状リンパ管腫 (cavernous lymphangioma of the pancreas) は極めて稀な膵非上皮性腫瘍であり, 我々の検索し得た限り, 本邦報告例, 欧米報告例を含めて, 自験例をあわせて15例¹⁾⁹⁾であった。今回我々は, 術前画像診断で膵あるいは膵周辺に発生した嚢胞状腫瘍と診断した症例に対して, 腹腔鏡下腫瘍摘出術を施行し, 膵海綿状リンパ管腫と診断した1例を経験したので報告する。

症 例

症 例: 49歳男性。

主 訴: 膵体尾部腫瘍

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 1970年虫垂切除術・造影剤アレルギー

現病歴: 1997年9月, 他院の人間ドックで膵体尾部に膵嚢胞を指摘され, 精査するも良悪性の鑑別はつかなかった。1998年10月, さらなる精査を希望され当院を受

診した。膵炎の既往はないものの仮性膵嚢胞の診断で経過観察していたが, 1999年2月, 嚢胞の増大傾向がみられたため当科に紹介された。

入院時現症: 身長165cm, 体重68kg。血圧130/78mmHg, 脈拍72/分, 整。腹部は平坦で軟, 腫瘍は触知せず, 左上腹部に軽度圧痛を認めた。肝・脾は触知しなかった。

入院時検査成績: 尿検査では異常所見なし。末梢血, 血液生化学検査においても異常所見は認められず, 腫瘍マーカーもCEA: 1.9ng/ml, CA19-9: 5 U/ml未満と正常範囲内であった。

腹部CT検査(図1): 膵体尾部背側から頭側に突出して胃の背側にいたるlow density massを認めた。膵との境界は明瞭で石灰化はなく, 菲薄な被膜を有する最大径5.5cmの扁平な膵嚢胞と診断した。周辺リンパ節の腫大は認めなかった。

腹部MRI検査(図2): 膵体尾部背側にT1強調でlow intensity, T2強調でvery high intensityを呈する境界明瞭なmassを認めた。

逆行性膵管造影(ERP)検査(図3): 主膵管に拡張・不整, 偏位・圧排を認めず, 嚢胞との交通もなかった。なお当検査後, 造影剤によるアレルギー症状を呈したため, 造影CT検査や血管造影は実施しなかった。

MRCP検査(図4): 嚢胞は膵体尾部から頭側に, 最大径7cmの扁平なhigh intensity massとして描出された。また膵頭部にも径1cmの同様な腫瘍の存在が疑われた。

以上の検査結果から, 膵体尾部の嚢胞腺腫あるいは同部周辺のリンパ管腫を疑い経過観察していたが, 増大傾向があることから, malignant potentialを有する膵嚢胞

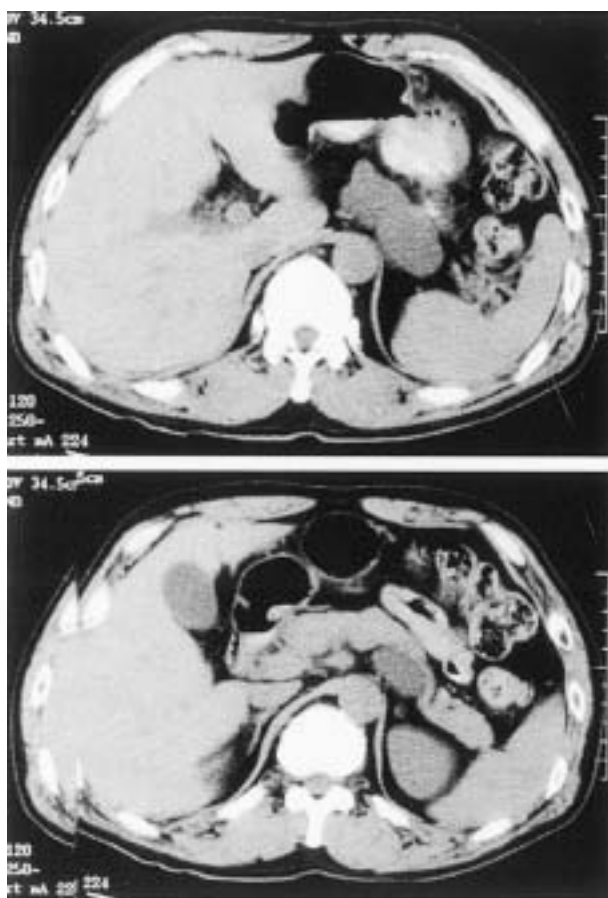


図1 腹部CT検査

膵体尾部背側から頭側に突出して胃の背側にいたる low density mass を認めた。

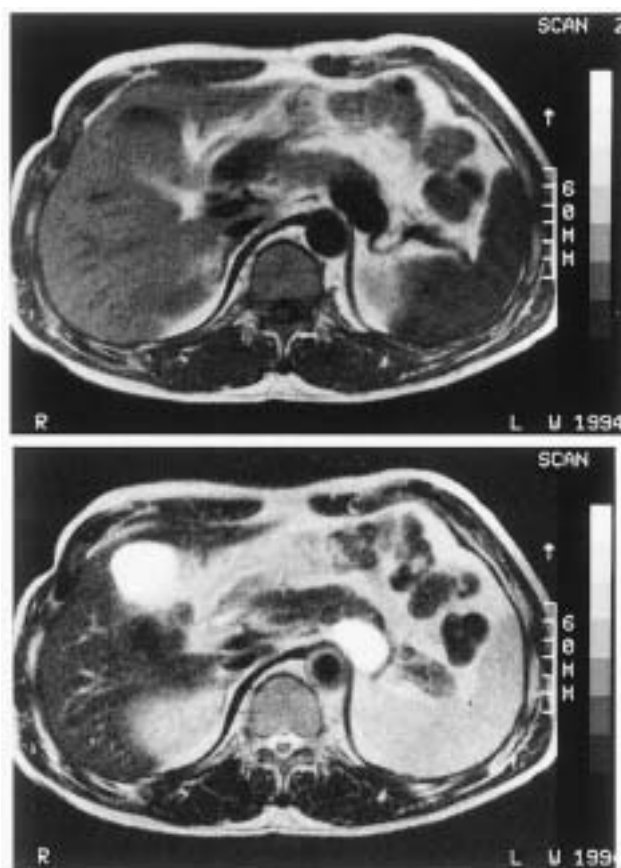


図2 腹部MRI検査

膵体尾部背側に T1 強調 (上) で low intensity, T2 強調 (下) で very high intensity を呈する mass を認めた。



図3 逆行性膵管造影 (ERP) 検査

主膵管に拡張・不整や、偏位・圧排を認めず、嚢胞との交通もなかった。

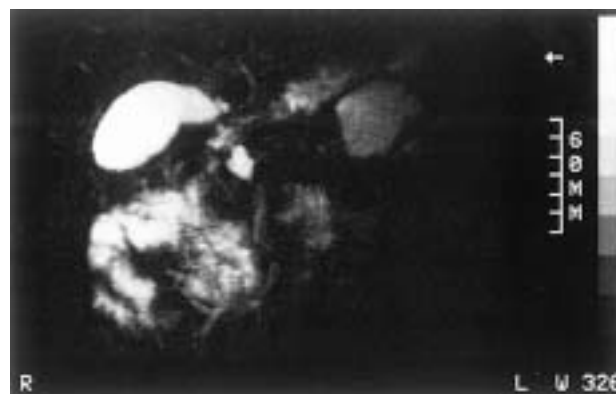


図4 MRCP 検査

嚢胞は膵体尾部に、最大径 7 cm の偏平な high intensity mass として描出された。

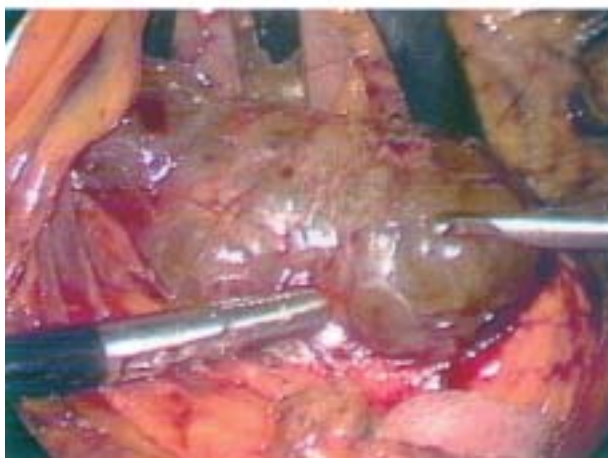
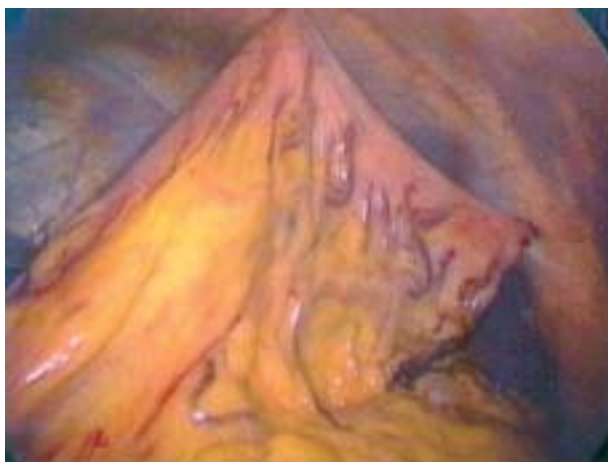
性腫瘍も否定し得ず、1999年6月14日、腹腔鏡下に観察し、摘出あるいは内容液および嚢胞壁の一部を迅速病理診断することを目的として、手術を施行した。

手術手技：患者を半砕石位とし、術者は脚間に、助手（鏡者）は患者の右側に位置し、臍下部に10mm、右上腹部に5mm、左側腹部に10mmのポートを作成し、手術を開

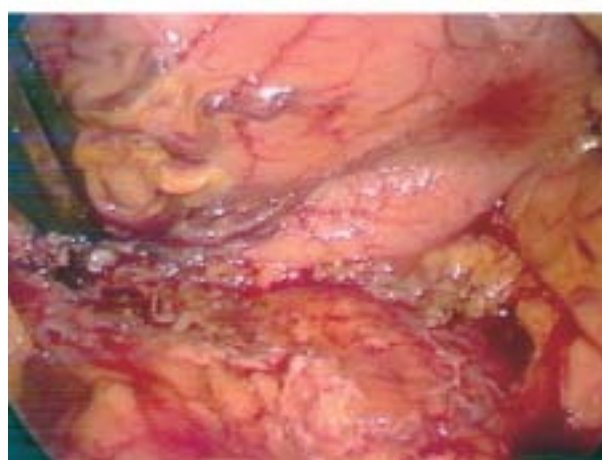
始した。まず胃体部大弯側を前腹壁に2点吊り上げ固定した(図5 a)。胃大網動静脈を温湿しつつ大網を約15cm横切開し、脾前面頭側を観察した(図5 b)。腫瘍は薄い被膜を有する多房性嚢胞であり、貯留性嚢胞が疑われ

たため、左上腹部にポートを追加して、胃後壁を圧排し摘出することとした(図5 c)。脾との剥離は超音波切開凝固装置のブレードタイプで行った。脾実質より流入する小血管は十分に止血し得た。脾動脈上縁に沿って剥離し(図5 d)、腫瘍を損傷することなく摘出した(図5 e)。術中迅速病理診断にて悪性所見はないことを確認後、脾との剥離面にフィブリン糊を塗布し、同部にドレーンを留置して手術を終えた。術中出血量は少量で、手術時間は125分であった。

病理組織学的所見(図6): 摘出された腫瘍は7.0×5.5×3.0cmの、結合織でかこまれた多房性腫瘍であった。内腔は一層の内皮細胞で被われ、細胞浸潤や悪性所見は認めなかった。嚢胞内容液中のamylase値は654IU/Lと軽度高値、リンパ球が多数含まれ、K-ras12変異はWild(+), 1st-letter(), 2nd-letter(), テロメラゼ活性()で、cavernous lymphangiomaと診断された。



(上)図5 a 胃体部大弯側を前腹壁に2点吊り上げ。
(中)図5 b 大網を約15cm横切開。
(下)図5 c 多房性嚢胞、胃後壁を圧排しつつ摘出。



(上)図5 d 脾動脈(矢印)上縁に沿って剥離。
(下)図5 e 脾との剥離面。

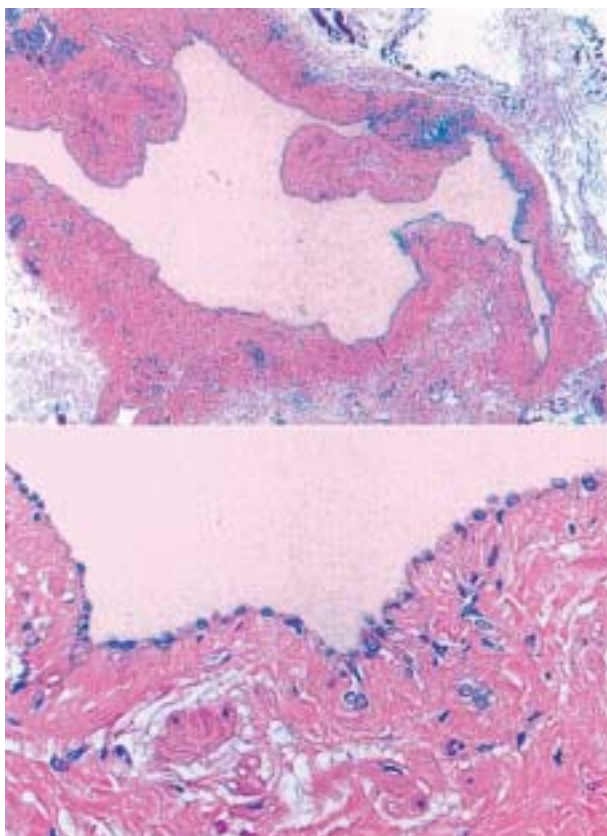


図6 病理組織学的所見

悪性所見は認めず，結合織でかこまれた多房性腫瘍であった。内腔は一層の内皮細胞で被われ，細胞浸潤はみられなかった。

術後経過は良好で，第12病日に退院された。術後4年の現在特別な愁訴はなく，膵頭部嚢胞の増大傾向はない。

考 察

一般にリンパ管腫の成因は胎生期のリンパ管流出路閉塞とされており，体表に発生することが多く，腹腔内での発生は稀である¹⁰⁾。その中でも膵リンパ管腫はさらに稀な疾患であり，検索し得た範囲内では，本邦報告例，欧米報告例を含めて，自験例をあわせて53例の報告があるのみであった^{1, 22)}。なかでも cavernous lymphangioma は自験例を含めて15例^{1, 9)}であった。

報告例での発症年齢は2歳から81歳と広範囲に分布しているが，50歳以上に多い傾向がみられた。性差はほとんどないが，女性にやや多い傾向にあった。主訴は上腹部痛・腫瘤触知が多いが，最近では自験例のように，検診で無症状に発見される例が増えている^{11, 18, 19)}。

膵リンパ管腫は，病理組織学的に cystic type と cav-

ernous type が報告されており¹⁶⁾，cavernous type は自験例を含めて15例と極めて少ない。

cystic type と cavernous type に共通するのは，膵外発育優位型で，周囲臓器の圧排が主な所見であり，膵機能の異常例はほとんどなく，発育は緩徐であるが，後腹膜腔に存在するため，発見時にはかなりの大きさになっていることである⁷⁾。しかし悪性化の報告はみられず，無症状であれば経過観察は可能であると思われる。

cystic type は膨張性に発育し，周囲臓器からの剥離や切除が容易な例が多いが，cavernous type の中には周囲臓器に浸潤性に発育し，剥離・切除が困難なことがある^{3, 5, 7)}。

cystic type と cavernous type の画像診断での鑑別は容易ではない。報告例での両者の画像上の特徴をみると，腹部超音波検査では，cystic type は薄い平滑な壁を持つ嚢胞として描出されることが多いが，cavernous type は内部エコーを有することが多い²²⁾。

腹部CT検査では，cystic type は隔壁濃染像を認めることが少なく，cavernous type は隔壁濃染像を認めることが多く，ときに壁の石灰化を伴うことがある²²⁾。

ERCP検査では圧排所見のみで，膵管と嚢胞の交通も認められず，鑑別手段とはならない。

MRI検査はまだ施行例が少なく，両者の鑑別に寄与するものではない。

これまでの報告例をみても，実際に膵リンパ管腫と術前診断された例はない。ましてや cystic type と cavernous type の鑑別を術前に行うことは，非常に困難である。

自験例も，極めて菲薄な嚢胞壁を有する膵良性嚢胞性腫瘍として，リンパ管腫を念頭に置いていたが，造影剤アレルギーにより造影CTや血管造影検査を断念せざるを得なかったため，経過観察には勇気を要した。なぜ腫瘍が増大傾向を示したのかは不明だが，malignant potential を有する膵嚢胞性腫瘍も否定し得ず，十分なインフォームド・コンセントを行い，嚢胞の直接観察・嚢胞内容液の精査・嚢胞壁の採取・嚢胞の摘出による病理学的診断を目的として，腹腔鏡下手術を施行した。直接観察によって，良性嚢胞性腫瘍が疑われたこと，嚢胞壁は薄いものの弾性に富み，愛護的に剥離することで，嚢胞を損傷することなく摘出が可能と判断して，腹腔鏡下膵嚢胞摘出術を行った。結果として，過大な手術侵襲を加えることなく，極めて良好な結果が得られたと考えている。

今回の経験から，膵外発育優位で，良く皮膜化された，悪性を示唆する所見と臨床症状に乏しい膵腫瘍は，腹腔鏡下摘出術のよい適応に成りうると考えられた。

結 語

腹腔鏡下に膵海綿状リンパ管腫を摘出し得た症例を経験したので，文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は，第13回日本内視鏡外科学会総会にて発表した。

文 献

- 1) Provkov, P.M. : Fibrolymphangioma of the pancreas simulating cancer of the stomach(in Russian) Vestn. Khir., 96 : 96 97 ,1966
- 2) Dodds, W.J., Margolin, F.R., Goldberg, H.I. : Cavernous lymphangioma of the pancreas. Radiol. Clin. Biol., 38 : 267 270 ,1969
- 3) 峰田武興，小野寺時夫：膵臓海綿状リンパ管腫と頭蓋内動脈瘤の共存した1例．外科治療 22 : 699 703 , 1970
- 4) Maurer, W., Locher, G.W. : Lymphangiom des Pankreaskopfs. Helv. Chir. Acta., 39 : 801 807 ,1972
- 5) Gonzales, L.E., Zapatero, A.H., Fernandez, E.P. : Lymphangioma of the pancreas. Chir. Gastroenterol., 10 : 225 233 ,1976
- 6) Hanelin, L.G., Schimmel, D.H. : Lymphangioma of the pancreas exhibiting an unusual pattern of calcification. Radiology ,122 : 636 ,1977
- 7) 荒木京二郎，田村精平，山崎奨，緒方卓郎 他：膵リンパ管腫の1例．癌の臨床 29 : 1706 1710 ,1983
- 8) 田中淳司，宮城島拓人，黒川美朝 他：膵リンパ管腫の1例．日消誌 83 : 2258 2263 ,1986
- 9) Letoquart, J.P., Marcocelles, P., Lancien, G., Pompilio, M., *et al.* : Un nouveau cas de lymphangiome kystique du pancreas. J. Chir. (Paris) ,126 : 650 658 ,1989
- 10) Daltrey, I.R., Johnson, C.D. : Cystic lymphangioma of the pancreas. Postgrad. Med. J., 72 : 564 566 ,1996
- 11) Hayashi, J., Yamashita, Y., Kakegawa, T., Ogata, M., *et al.* : A case of cystic lymphangioma of the pancreas. J. Gastroenterol., 29 : 372 376 ,1994
- 12) Khandelwal, M., Lichtenstein, G.R., Morris, J.B., Furth, E.E., *et al.* : Abdominal lymphangioma masquerading as a pancreatic cystic neoplasm. J. Clin. Gastroenterol., 20 : 142 144 ,1995
- 13) Fan, Y.C., Shih, S.L., Yan, F.S., Pang, K.K., *et al.* : Cavernous lymphangioma of the pancreas : a case report. Pancreas ,11 : 104 105 ,1995
- 14) Abe, H., Kubota, K., Noie, T., Bandai, Y., *et al.* : Cystic lymphangioma of the pancreas : a case report with special reference to embryological development. Am. J. gastroenterol., 92 : 1566 1567 ,1997
- 15) Viola, G., Frontera, D., Bellantone, R., Doglietto, G.B., *et al.* : Lymphangioma of the pancreas : a case report. Pancreas ,14 : 207 210 ,1997
- 16) Itterbeek, P., Vanclooster, P., de Gheldere, C. : Cystic lymphangioma of the pancreas : an unusual cause of the acute surgical abdomen. Acta. Chir. Belg., 97 : 297 298 ,1997
- 17) Gray, G., Fried, K., Iraci, J. : Cystic lymphangioma of the pancreas ; CT and pathologic findings. Abdom. Imaging 23 : 78 80 ,1998
- 18) 羽柴光起，中田美保子，坂崎富夫，長谷川隆 他：膵リンパ管腫の1例．臨放 30 : 833 836 ,1985
- 19) Scotte, M., Majerus, B., Laquerriere, A., LeBlanc, I., *et al.* : Cystic lymphangioma of the pancreas. Three new cases. Ann. Chir., 46 : 359 361 ,1992
- 20) Paal, E., Thompson, L.D., Heffess, C.S. : A clinicopathologic and immunohistochemical study of ten pancreatic lymphangiomas and a review of the literature. Cancer 82 : 2150 2158 ,1998
- 21) de Perrot, M., Rostan, O., Morel, P., Le Coultre, C. : Abdominal lymphangioma in adults and children. Br. J. Surg., 85 : 395 397 ,1998
- 22) 國田哲子，岡志郎，伊藤博之，木村誠一郎 他：膵リンパ管腫の1例．日消誌 96 : 1190 1195 ,1999

A case of laparoscopic excision for cavernous lymphangioma of the pancreas

Tosiyuki Yagi, Ryozo Fujino, Shigeharu Takai, Hitoshi Miki, Masayuki Sumitomo, Kazuo Matsuyama, Yorihiro Ogata, Yasusi Nakagawa, Yoshihumi Kanemura, Yuji Kaneda, and Hirotsugu Kurobe

Department of Surgery, Tokushima Prefectural Central Hospital, Tokushima, Japan

SUMMARY

Cavernous lymphangioma of the pancreas is a rare condition, recognized as nonepithelial pancreatic cystic tumors. This is the first case report, to our knowledge, of performance of a laparoscopic excision for lymphangioma of the pancreas.

A 49 year-old male presented with an enlarged cystic tumor involving the pancreas body and tail and without abdominal pain, was prepared for laparoscopic excision.

The surgical specimen showed a multicystic mass measuring 7.0 × 5.5 × 3.0cm, which was diagnosed as a benign lymphangioma with cavernous features.

The patient remains symptom free 4 years after laparoscopic excision

Key words : cavernous lymphangioma, pancreas, laparoscopic surgery, cystic neoplasm, laparoscope