

山下 理子¹⁾ 高見 京子¹⁾ 浜井 和子¹⁾ 中西 一世²⁾
藤井 義幸²⁾ 別宮 史朗³⁾ 猪野 博保³⁾

- 1) 徳島赤十字病院 検査部
2) 徳島赤十字病院 病理部
3) 徳島赤十字病院 産婦人科

要 旨

ダグラス窩穿刺および術中の腹水検査で異型のないリンパ球増多がみられ、術中迅速診断で卵巣の海綿状リンパ管腫が明らかになったまれな1例を経験したので報告する。症例は手術や悪性腫瘍の既往のない40代前半の女性で、右卵巣腫大と腹水貯留を認めた。画像血液検査では悪性を疑わせる所見はなかった。ダグラス窩穿刺による腹水検査では淡赤色の乳状に混濁した腹水が得られ、細胞学的に比較的異型の乏しい小型リンパ球が多数みられ、乳び様の背景を伴っていた。摘出された卵巣の病理組織では、海綿状リンパ管腫の所見であり、乳び様腹水は卵巣リンパ管腫の破たんによるものである可能性が示唆された。

キーワード：卵巣，リンパ管腫，乳び腹水，細胞診

はじめに

卵巣原発のリンパ管腫の報告はまれで、卵巣腫瘍の原因として鑑別に挙げられることは少ない。今回、卵巣リンパ管腫により乳び様腹水を合併したと思われるまれな1例を経験したので、その細胞所見，病理所見を中心に報告する。

症 例

患者は40歳代前半，3経妊，3経産。既往歴はなし。近医にて左卵巣腫瘍を指摘され，当院産婦人科に紹介された。身体所見には特記すべきことはなく，月経周期は26日，整であった。血液検査所見や腫瘍マーカー検査（CA19-9，CA125，STN）の値は正常であった。2回の経膈エコー検査では4.1×4.0×3.4cmのう胞状～充実性の腫瘤影がみられた。また，ダグラス窩に腹水がみられた。左卵巣と子宮には異常はなかった。病変はMRIではT1強調画像で低信号，T2強調画像で高信号を示し，一部造影効果を示した。

外来にて行われたダグラス窩穿刺では，イチゴミルク様の特異な概観を示す腹水が得られ，細胞学的検査

が行われた。Papanicolau染色では，乳び様の背景に，異型に比較的乏しい小型リンパ球が多数出現していた（図1，図2）。ギムザ染色では少数の単球やマクロファージを伴い，小型リンパ球にはわずかな核の切れ込みを有するものも散見されたが，反応性と判断された（図3）。好中球や中皮細胞はきわめて少数であるが観察された。上皮様細胞や悪性所見は乏しく，class

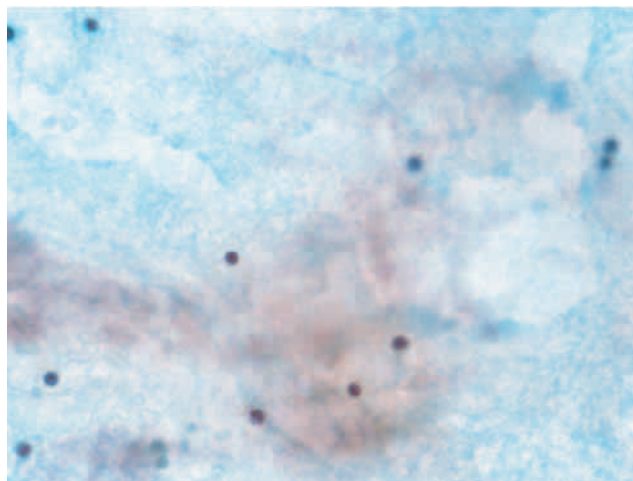


図1 腹水細胞診。Papanicolau，×200。乳び様の背景に小型リンパ球が多数出現している。

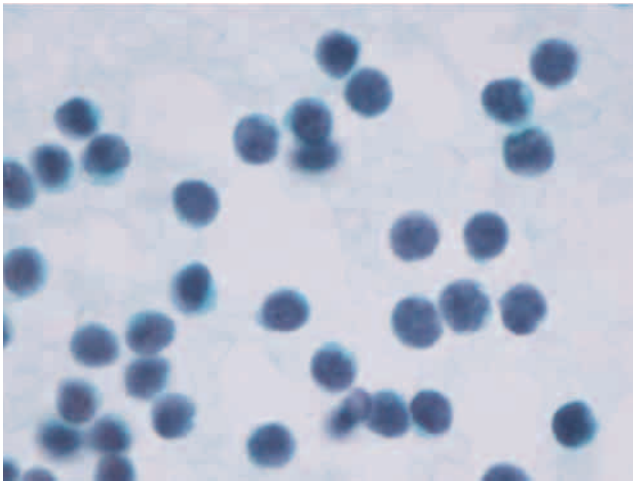


図2 腹水細胞診。Papanicolau, ×1,000. 小型リンパ球は比較的異型に乏しい。

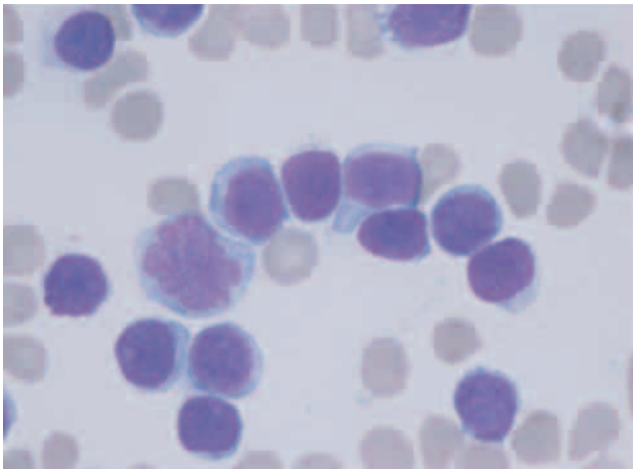


図3 腹水細胞診。Giemsa, ×1,000. 少数の単球やマクロファージを伴い、小型リンパ球にはわずかな核の切れ込みを有するものも散見されたが、反応性と判断された。

Ⅱと考えられたが、多数のリンパ球が乳び性の背景とともにみられる理由はこの時点では不明であった。なお、参考値であるが、検査部にて追加しえた腹水一般検査結果を後に示す(表1)。

開腹にて右卵管卵巣切除術を受けたが、腹腔内には炎症所見や他の異常はみられず、手術時の腹水は少量であった。右卵巣は、肉眼的には、表面平滑、断面の皮膜近くには黄体、白体が多数見られ、実質は海綿状であった(図4, 5)。組織学的にはスリット状の裂隙が卵巣皮質、髓質に広くみられ、内部にはリンパ球

表1 腹水一般検査(参考値)

外観	薄桃色混濁
比重	1.008
PH	6.5
糖(mg/dl)	94



図4 卵巣腫瘍。摘出後の新鮮材料。腫大を示すが色調変化は乏しい。

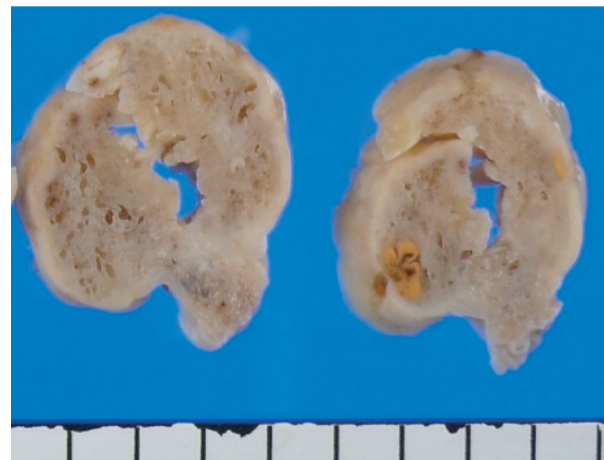


図5 卵巣腫瘍。固定材料の断面(一部)。最小目盛りは5mm。右の断面に黄体がみられる。実質はスポンジ様を示している。

がみられた(図6)。また、皮質近く存在する卵胞内部にも小型リンパ球がみられた。免疫組織化学的には脈管壁はD2-40に陽性であった(図7)。これらは海綿状リンパ管腫に一致する所見である。なお、術後経過は良好である。

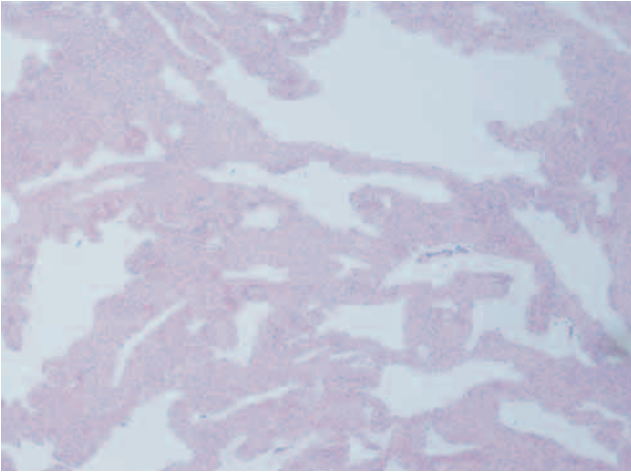


図6 組織像。HE, ×100組織学的にはスリット状の裂隙が卵巣皮質, 髄質に広くみられた。内部には小型リンパ球がみられた。

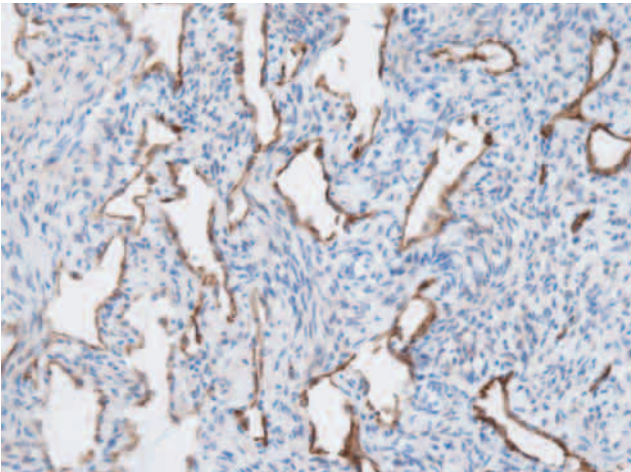


図7 組織像。D2-40免疫染色, ×200。脈管壁はD2-40に陽性で、リンパ管であることが示唆される。

考 察

リンパ管腫はのう胞状, 海綿状などの亜型が知られ, 基本的に良性の腫瘍であるが, 過誤腫としての性格もあるとされる。小児においては頭頸部48%, 体幹および四肢42%であり, 内臓(胸腔や腹腔)は10%と比較的少ない¹⁾。治療は外科的切除とされるが, 完全切除が難しい場合には再発もみられる。

卵巣のリンパ管腫はいくつかの報告がみられる²⁾が, 2006年までの報告例は17例と比較的まれな病変と思われる³⁾。いずれも偶発的に発見されたものが多

く, 臨床症状は乏しい。

一方, 乳び腹水は, 悪性腫瘍, 外傷(手術), フィラリア症などを原因とすることが多いが, 小児では先天性乳び腹水が, また若年女性の致死性肺疾患として知られる過誤腫性肺脈管筋腫症 lymphangiomyomatosis (LAM) の一症状であることもある⁴⁾。この場合, 本例のような典型的なリンパ管腫ではなく, angiomyolipoma など平滑筋マーカー陽性の腫瘍を合併することが多い⁴⁾。したがって, 予期せず乳び腹水に遭遇した場合には, 胸部を含めた画像検査や呼吸器症状の有無などのチェックが必要かもしれない。

なお, 本例では, 概観上, 穿刺時の血液を混じたイチゴミルク様を示し, 特異な概観から乳び腹水が疑われたが, 乳びを証明するために脂肪染色による脂肪球の証明や, エーテルによる溶解試験⁵⁾を行っていない。したがって, 本稿では乳び様腹水と記載している。また今回は依頼がなかったこともあり, 病理学的検索のみに終始したが, 今後, 乳び様の混濁した検体が得られた場合には, 一般検査も提出することが望ましいと思われる。そうすれば, 浸出液, 漏出液の確定ができるうえ, 乳びの証明試験も考慮されるので方針決定に役だつと思われる。

細胞学的には一般に, 胸腹水やリコールにリンパ系細胞を monotonous に認める場合は, 細胞の大きさにかかわらず, リンパ腫の浸潤を考慮するが, 本例においては, 細胞異型が比較的乏しいこと, 乳び様の背景を伴うことは一般的でないことから別に原因があると考えた。ただし, 長期貯留による刺激の影響か, 出現細胞には小型リンパ球でありながら核の切れ込みを有するものもみられ, 体腔液中のリンパ球は末梢血や骨髓よりやや異型が強くなることを再認識した。

最終的に, 本症例の乳び様腹水は, 組織診断がリンパ管腫であったこと, 腹腔に炎症所見が乏しかったこと, 参考値であるが一般検査から蛋白濃度は低く, 浸出液ではないと考えられたことなどから, リンパ管腫と関連して発生したのではないかと推測している。少数であるが卵胞内にもリンパ球がみられたことから, おそらくは, 周期的に破綻を繰り返す卵巣の臓器特性に関係して発生したのであろう。同様の報告は, 調べ得た範囲ではまだない。

以上, 乳び様腹水, 卵巣リンパ管腫, とともにまれで, 両者の合併は希少と考えられたので, 乳び腹水を見た場合の注意点や卵巣リンパ管腫の病理組織像とも

に報告した.

文 献

- 1) Alqahtani A, Nguyen LT, Flageole H et al: 25 years' experience with lymphangiomas in children. *J Pediatr Surg* 34:1164-8, 1999
- 2) Akyildiz EU, Peker D, Ilvan S et al: Bilateral lymphangiomas of the ovary: an immunohistochemical characterization and review of the literature. *Int J Gynecol Pathol* 18:87-90, 1999
- 3) Evans A, Lytwyn A, Urbach G et al: Lymphangioma of the ovary: a case report and review of the literature. *J BUON* 11:91-3, 2006
- 4) Johnson SR: Lymphangioleiomyomatosis. *Eur Respir J* 27:1056-65, 2006
- 5) 金井正光: 臨床検査法提要改訂第31版, p232, 金原出版, 東京, 1998

A Case of Chylous ascites Seemingly Attributable to Collapse of Lymphangioma

Michiko YAMASHITA¹⁾, Kyoko TAKAMI¹⁾, Kazuko HAMAI¹⁾, Kazuyo NAKANISHI²⁾,
Yoshiyuki FUJII²⁾, Shirou BEKKU³⁾, Hiroyasu INO³⁾

1) Division of Clinical Laboratory, Tokushima red cross Hospital

2) Division of Pathology, Tokushima red cross Hospital

3) Division of Obstetrics and Gynecology, Tokushima red cross Hospital

A woman without any history of malignancies nor surgical operation pointed out right ovarian mass in 5th decades of her life. Pink colored milky fluid obtained by Douglas pouch aspiration and ascites examination during operation. Cytological examination of the ascites revealed non-atypical lymphocytosis with chylous background. The final diagnosis of the resected tumor was ovarian lymphangioma same as rapid frozen diagnosis. We report this rare case with pathological findings of the resected tumor, and it suggested that chylous ascites might be related to collapse of the tumor.

Key words: ovary, lymphangioma, chylous ascites, cytology

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 14:101-104, 2009
