

# 悪性リンパ腫の精査中に発見され鑑別診断が困難であった 頸部嚢胞性リンパ管腫の1例

奈良県立医科大学第3内科学教室

赤羽 たけみ, 栗山 茂樹, 増井 一弘, 吉川 正英  
小嶋 秀之, 吉治 仁志, 中谷 敏也, 福井 博

## A CASE OF CERVICAL CYSTIC LYMPHANGIOMA FOUND DURING THE EXAMINATION OF MALIGNANT LYMPHOMA AND DIFFICULT TO DIFFERENTIATE FROM MALIGNANT LYMPHOMA

TAKEMI AKAHANE, SHIGEKI KURIYAMA, KAZUHIRO MASUI,  
MASAHIDE YOSHIKAWA, HIDEYUKI KOJIMA, HITOSHI YOSHIJI,  
TOSHIYA NAKATANI and HIROSHI FUKUI

*Third Department of Internal Medicine, Nara Medical University*

Received June 16, 2000

*Abstract*: We report a case of cervical cystic lymphangioma that was found during the examination of malignant lymphoma and difficult to differentiate from malignant lymphoma. A 68-year-old man with chronic hepatitis type C developed a subcutaneous mass at his posterior cervical region and this slow-growing tumor was resected and diagnosed histologically as non-Hodgkin lymphoma (diffuse mixed, B cell type). Although no other superficial lymph nodes were palpable, ultrasonography (US) of the neck revealed a low echoic mass of 40mm×30mm in diameter at the left supraclavicular fossa. The computed tomography (CT) also showed an inhomogeneously enhanced mass at the same region. On magnetic resonance imaging (MRI), T1-weighted image showed a low intensity mass and T2-weighted image showed a high intensity mass. The mass was enhanced inhomogeneously by systemic infusion of gadolinium. Therefore, the differential diagnosis from malignant lymphoma was difficult. The mass was resected and finally diagnosed as cystic lymphangioma.

Cervical lymphangioma is rare among adults. Because US, CT and MRI examinations cannot provide definite information, the final diagnosis is usually made by histological examination of the resected specimens. In this case, the mass was found at the supraclavicular fossa near the malignant lymphoma. Therefore, the histological differential diagnosis from malignant lymphoma was extremely important.

(奈医誌. J. Nara Med. Ass. 51, 245~249, 2000)

---

**Key words**: cystic lymphangioma, malignant lymphoma, differential diagnosis, histological examination

## 緒 言

頸部嚢胞性リンパ管腫の90%は出生時から2歳までに発見され、成人例は非常に稀である<sup>1)</sup>。成人例では腫瘍触知以外ほとんど無症状で経過するため、診断が困難な場合が多く、術前正診率はわずか12.5%との報告もなされている<sup>2)</sup>。今回われわれは、悪性リンパ腫の精査中に左鎖骨上窩に腫瘍性病変が発見され、画像検査上悪性リンパ腫との鑑別に苦慮し、組織学的に嚢胞性リンパ管腫と診断し得た症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

## 症 例

患者：68歳、男性。

主訴：後頸部腫瘍。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：58歳時、早期胃癌のために、胃部分切除術を受けた。

現病歴：65歳時より、C型慢性肝炎にて近医通院中であった。平成6年10月頃、後頸部に径18mm大の皮下腫瘍に気付いたが、痛みや搔痒感を認めないため、近医にて経過観察とされた。しかし、約5ヶ月後には、腫瘍径が22mm大に増大したため、切除術を施行された。切除した腫瘍の組織学的検査では、小型から大型のリンパ球様細胞がびまん性に増生しており(Fig. 1a)、pan B cell

表面抗体を用いた免疫組織染色において、ほとんどの腫瘍細胞が染色されたことより(Fig. 1b)、non-Hodgkinリンパ腫(diffuse mixed, B cell type)と診断された。そこで、悪性リンパ腫の精査および加療目的のため、当科に紹介入院となった。

入院時現症：身長172.3cm、体重64.5kg、体温35.8℃、脈拍72/分、整。血圧114/70mmHg、意識清明、結膜貧血なし、強膜黄染なし。後頸部腫瘍切除部位に腫瘍を触知せず、表在リンパ節触知せず。胸部異常なし。腹部平坦、軟、圧痛なし。肝、脾、腎を触知せず。下腿浮腫なし。神経学的異常なし。

入院時検査成績：血沈は1時間値25mm、2時間値45mmと軽度の亢進を認めたが、尿、末梢血、生化学および血清学的検査には異常を認めなかった。

入院後経過：頸部超音波検査を行ったところ、左鎖骨上窩に径40×30mm大の不整形の境界明瞭な低エコーを呈する腫瘍性病変を認めた(Fig. 2)。頸部CT像でも、同部位に50×30mm大の楕円形の腫瘍性病変を認め(Fig. 3a)、造影CTでは、腫瘍は後方が強く前方が淡く不均一に造影された(Fig. 3b)。さらに、頸部MRIでも、同部位に境界明瞭な腫瘍性病変を認め、T1強調像では低信号(Fig. 4a)、T2強調像では著しい高信号を呈し(Fig. 4b)、造影MRIでは、腫瘍外側が強く内側が淡く不均一に造影された(Fig. 4c)。その後施行したガリウムシンチでは、abnormal hot areaを認めなかった。また、上

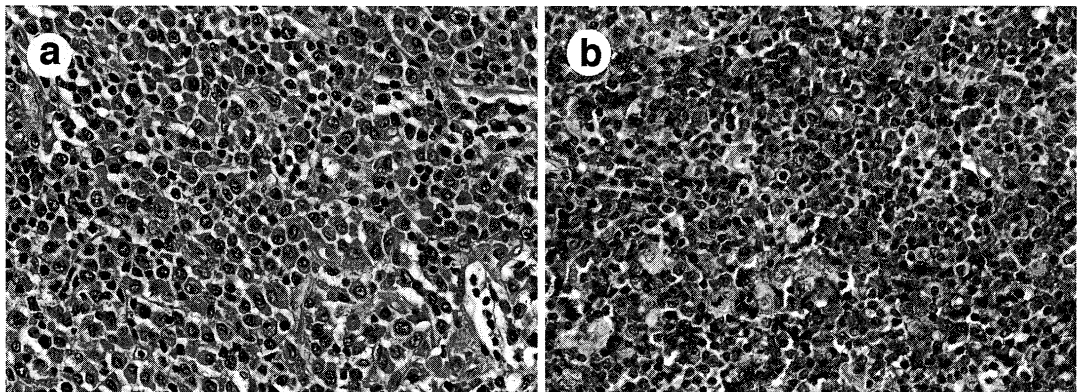


Fig. 1. Histological findings of malignant lymphoma. Lymphocyte-like tumor cells were diffusely observed in the tumor (a). Immunohistochemical staining revealed that the tumor cells were positive to pan-B-cell staining (b). (a, ×200; b, ×200)

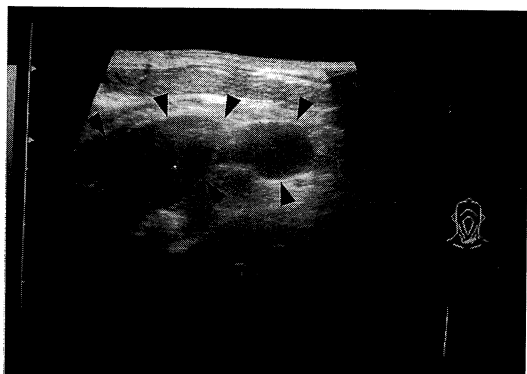


Fig. 2. US of the neck revealed a low echoic mass of 40mm×30mm in diameter at the left supraclavicular fossa, as indicated by arrowheads.

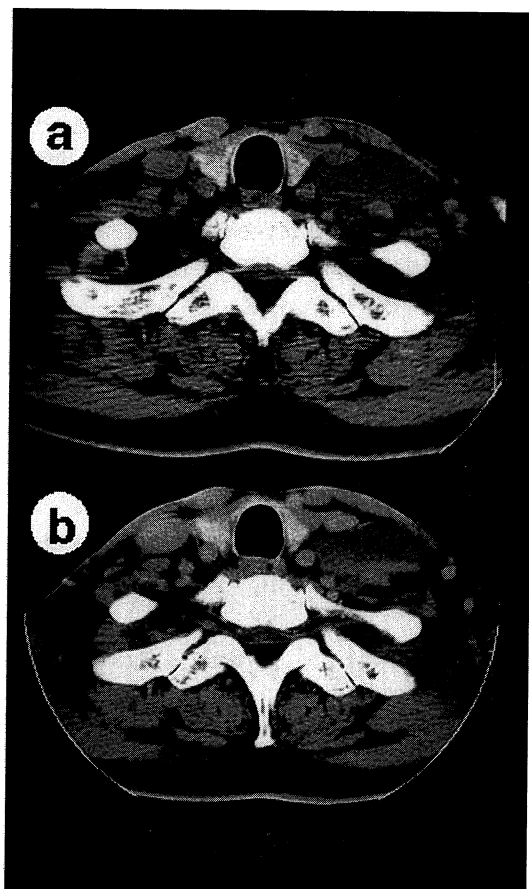


Fig. 3. CT of the neck revealed an ellipse-shaped mass (a), which was inhomogeneously enhanced (b).

部消化管内視鏡検査、腹部超音波検査および胸腹部CT検査を施行したが、リンパ節腫大や腫瘤を認めなかった。左鎖骨上窩の腫瘍性病変は、ガリウムシンチではhot areaとして描出されなかったが、CTおよびMRI検査所見からは悪性リンパ腫との鑑別が困難であったので、確定診断のために局所麻酔下に腫瘍を摘出した。腫瘍は容易に剝離することができ、凹凸のある弾性軟で50×40×20 mm大の多房性の腫瘍であった(Fig. 5)。組織学的には、平滑筋に取り囲まれた大小不同で不規則な脈管様

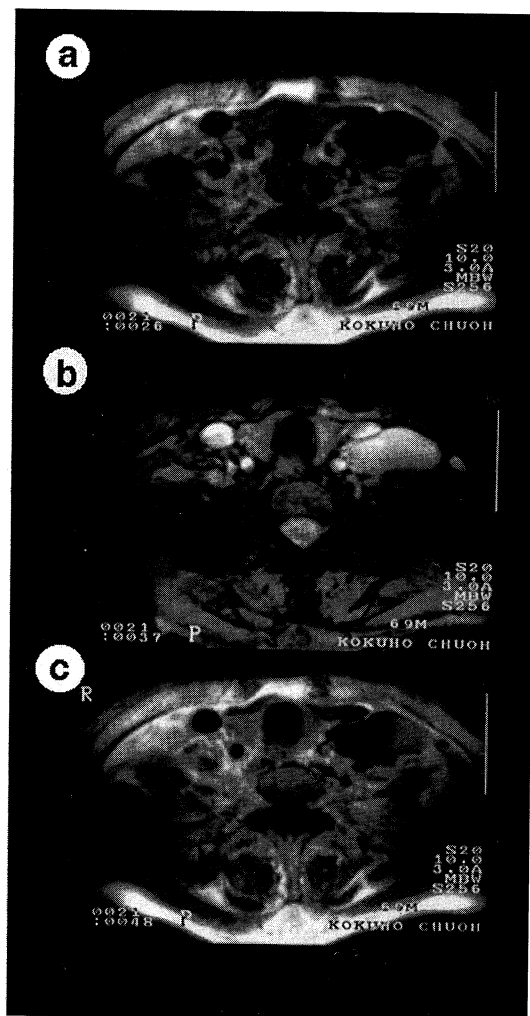


Fig. 4. MRI of the neck. T1-weighted image showed a low intensity mass (a). T2-weighted image showed a high intensity mass (b). The mass was enhanced inhomogeneously (c).

の構築を認めた(Fig. 6a). 強拡大像では、脈管様構築の内腔表面は、やや背の高い内皮細胞によって覆われていた(Fig. 6b). 以上の組織学的所見から、嚢胞性リンパ管腫と診断した. したがって、悪性リンパ腫は後頸部に認めただのみであり、stage I と診断した. そこで、CHOP療法(Cyclophosphamide 950 mg, Doxorubicin hydrochloride 60 mg, Vincristine sulfate 2 mg, Prednisolone 40 mg×5 days)を3クール行った後、後頸部局所に40 Gyの放射線を照射した. CHOP療法後、一過性に顆粒球減少が出現し、発熱および間質性肺炎を認めたが、GCSFおよび抗生物質の投与により解熱し肺炎も改善した. 化学療法による肝機能の増悪は認めなかった. また、放射線

療法による副作用はまったく認めなかった. 治療終了後、ガリウムシンチ、頸部超音波検査、頸部MRIなどの画像検査をおこなったが、腫瘍性病変を認めなかったため退院となった.

## 考 察

一般にリンパ管腫は、胎生期の発生異常により形成された良性の腫瘍と考えられている. あらゆる年齢で発症するが、その約90%は2歳以下の小児期に発見され、成人例は非常に稀である<sup>1)</sup>. リンパ管腫は、リンパ管が存在する部位にはどこにでも発生し得るが、頸部に最も好発する. これは、jugular sacが胎生期の一番最初に発生し、最も大きいためと考えられている. 成人例は、感染<sup>1,3)</sup>、局所の炎症<sup>4)</sup>、外傷による刺激<sup>5)</sup>などが発症の誘因となることが報告されているが、明らかな誘因がなく発症する場合も報告されている<sup>2)</sup>.

頸部リンパ管腫と鑑別する必要がある疾患としては、branchial cleft cyst, thyroglossal duct cyst, lipoma, hemangioma, 悪性新生物などがあげられるが、術前に画像検査にて鑑別することは非常に困難で、ほとんどが腫瘍切除後に組織学的に診断されている. 特に、鎖骨上窩リンパ節は、頭頸部悪性腫瘍だけでなく胸腹部悪性腫瘍からの転移とも関係しているため、鎖骨上窩の腫瘍は、悪性疾患の転移を念頭におき組織学的な鑑別診断を行うことが重要である<sup>6)</sup>.

Mayo clinicは、1950年から1982年の32年間で、成人の頸部リンパ管腫を32例経験したと報告している<sup>7)</sup>.



Fig. 5. Gross specimen of the tumor showed a smooth and multilobular appearance.

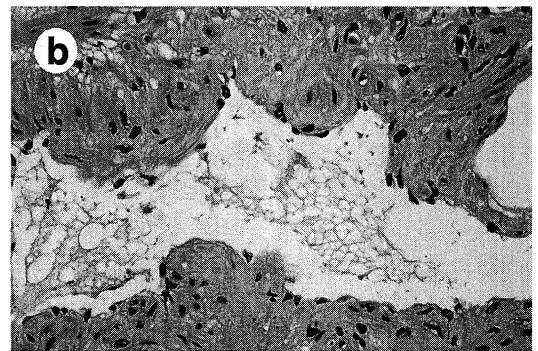


Fig. 6. Hematoxylin-eosin stain of the tumor showed small and large channels surrounded by the smooth muscle (a), and the channels lined with endothelium (b). (a, ×40; b, ×400)

この32例中31例は、頸部腫瘍を自覚しているが、痛みを伴っていたものは1例のみで、その他は腫瘍触知以外無症状であった。また、2例に上気道炎の既往があった以外はどの症例も外傷の既往などはなく、ほとんどの症例でリンパ管腫の増大した誘因は不明であったとされている。さらに、全例が外科的切除を施行されているが、術前にリンパ管腫と診断されたものは4例(12.5%)にすぎず、その他の症例は、lipoma, lymphadenopathyあるいはbranchial cleft cystと診断されていた。本症例においても、自覚症状はまったく認めず、左鎖骨上窩の腫瘍は他覚的にも触知されず、悪性リンパ腫の精査中に画像検査で偶然発見された。また、画像検査上質の診断をおこなうことは非常に困難であった。

病理組織像としては、嚢胞壁は一層の薄い平らな内皮で被われ、腔内にリンパ球の集積と被膜にリンパ球の集合が認められる。また、嚢腫内に血管、平滑筋、神経などの組織が索状に認められることもあるとされ、以下のように分類されている<sup>7)</sup>。

- 1) lymphangioma simplex: 薄い管腔壁をもつ小さなリンパ管が集合したもの。
- 2) cavernous lymphangioma: 薄い管腔壁をもつ拡張したリンパ管が集合したもので、管腔壁の周囲には線維性構造が取り巻いている。
- 3) cystic lymphangioma: 数mmから数cmの嚢上に拡張したリンパ管腔よりなり、管腔は平らな内皮細胞に覆われている。

本症例は、嚢状に拡張したリンパ管腔を多数伴っており、cystic lymphangiomaと診断した。

本症に対する治療法としては、手術摘出が第一選択となる。周囲組織を含めて、十分に摘出することが望ましい。手術成績に関しては、成人症例の長期経過観察報告によると、28例中6例(21%)に再発が見られ、再発時期はほとんどの症例で1年以内であった<sup>1,2)</sup>。また、不完全切除例の再発率は、さらに高率であると報告されている<sup>8)</sup>。本症例においては、腫瘍による自覚症状がまったくなく、悪性リンパ腫との鑑別診断が目的であったため、当初は腫瘍の生検を予定していた。しかし、腫瘍は容易に剝離することができたため、腫瘍を完全に摘出することとなった。もし不完全に切除した場合、再発の可能性

が高率になることや、手術による物理的刺激により、リンパ管腫を増大させる可能性もあるため、リンパ管腫を完全摘出することが、本症例においても最良であったと考えられる。

以上、悪性リンパ腫の精査中に左鎖骨上窩に腫瘍性病変が発見され、画像検査上、悪性リンパ腫との鑑別に苦慮し、組織学的に嚢胞性リンパ管腫と診断し得た症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

## 文 献

- 1) Karmody, C. S., Fortson, J. K. and Calcaterra, V. E.: Lymphangiomas of the head and neck in adults. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* **90**: 283-288, 1982.
- 2) Schefter, R. P., Olsen, K. D. and Gaffey, T. A.: Cervical lymphangioma in the adult. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* **93**: 65-69, 1985.
- 3) Goodman, P., Yeung, C. S. T. and Batsakis, J. G.: Retropharyngeal lymphangioma presenting in an adult. *Otolaryngol. Head Neck Surg.* **103**: 476-479, 1990.
- 4) 沼田 稔, 安里 進, 細江志郎, 伊藤憲雄, 林 四郎: 成人に発症した頸部リンパ管腫の2例. *外科* **43**: 1500-1504, 1981.
- 5) 大津一弘, 中野豊道, 東 信隆, 徳島雄二, 魚谷啓, 今村祐司: 成人の頸部嚢腫性リンパ管腫の1例. *広島医学* **42**: 1312-1314, 1989.
- 6) Preyer, S., Kaiserling, E., Heinle, H., Földi, E., Zenner, H. P. and Földi, M.: Benign supraclavicular tumorous lymphangiectasia-A new disease? *Lymphology* **28**: 118-125, 1995.
- 7) Landing, B. H. and Farber, S.: Tumors of the Cardiovascular System. In *Atlas of tumor pathology*, Section 3, Fascicle 7. Armed Forces Institute of Pathology, Washington, DC, p1-138, 1956.
- 8) Kennedy, T. L.: Cystic hygroma - lymphangioma; a rare and still unclear entity. *Laryngoscope* **99** suppl **49**: 1-10, 1989.