

RETROCRURAL CYSTIC LYMPHANGIOMA

後横隔膜脚嚢胞性リンパ管腫

SADAYUKI MURAYAMA, M.D. 村山貞之



RADIATION EFFECTS RESEARCH FOUNDATION

財団法人 放射線影響研究所

A Cooperative Japan - United States Research Organization

日米共同研究機関

ACKNOWLEDGMENT

謝 辞

We are indebted to Katsuhide Ito, M.D., for supplying the computed tomographic illustration, and to Mrs. Grace Masumoto for her assistance in preparing the manuscript. We are grateful to Yokogawa Medical Systems and the General Electric Company for being very considerate and generous in providing a G.E. Datason contact-compound ultrasonographic scanner which has proved invaluable in our imaging. Some of the images appearing in this report were made using this unit.

コンピューター断層像を提供していただいた伊藤勝陽博士，及び原稿作成上の援助をされた舩本幸江氏に謝意を表す。我々の画像診断に不可欠であった G.E. Datason コンタクト・コンパウンド超音波スキャナーを提供して下さった横河メディカルシステム株式会社と General Electric 社の御厚意に感謝する。本報で示した画像はこの装置によるものである。

RERF TECHNICAL REPORT SERIES

放射線研業績報告書集

The RERF Technical Reports provide the official bilingual statements required to meet the needs of Japanese and American staff members, consultants, and advisory groups. The Technical Report Series is not intended to supplant regular journal publication.

放射線研業績報告書は、日米専門職員、顧問、諮問機関の要求に応えるための日英両語による公式報告記録である。業績報告書は通例の誌上発表論文に代わるものではない。

The Radiation Effects Research Foundation (formerly ABCC) was established in April 1975 as a private nonprofit Japanese Foundation, supported equally by the Government of Japan through the Ministry of Health and Welfare, and the Government of the United States through the National Academy of Sciences under contract with the Department of Energy.

放射線影響研究所(元 ABCC)は、昭和50年4月1日に公益法人として発足したもので、その経費は日米両政府の平等分担により、日本は厚生省の補助金、米国はエネルギー省との契約に基づく米国学士院の補助金をもって運営されている。

RETROCRURAL CYSTIC LYMPHANGIOMA

後横隔膜脚嚢胞性リンパ管腫

SADAYUKI MURAYAMA, M.D. (村山貞之)

Department of Radiology

放射線部

SUMMARY

Pure posterior mediastinal cystic lymphangiomas are very rare, and have seldom been documented. This is a report of such a case, including the ultrasonographic and computed tomographic manifestations of the lesion – the first documentation of such manifestations in the literature.

INTRODUCTION

Purely mediastinal cystic lymphangiomas are very uncommon. Most of them occur in the superior or anterior mediastinum; less than 10% are in the posterior mediastinum.¹ There have been few published reports of posterior mediastinal cystic lymphangiomas.¹ This is a report of a retrocrural cystic lymphangioma documented by chest radiography, ultrasonography, and computed tomography.

Case Report, MF#

This 66-year-old, asymptomatic man's routine chest radiographs revealed a posterior mediastinal mass. He had no history of trauma or surgery. There was no evidence of lymphadenopathy on palpation. An oral cholecystogram 10 years previously showed widening of the left paraspinal musculature at the level of the 12th thoracic vertebra (Figure 1a). Posteroanterior (PA) stereoscopic and left lateral projections of the chest showed a 7 cm diameter round mass to the left of the bodies of T11, T12, and

要約

純性の後縦隔嚢胞性リンパ管腫は極めてまれで、報告例も少ない。本症例を文献学的には最初の超音波検査及びコンピューター断層の所見を含めてここに報告する。

緒言

純性の後縦隔嚢胞性リンパ管腫は非常にまれである。その大部分は、上縦隔か前縦隔に発生し、後縦隔に発生する例は10%以下にすぎない。¹ 後縦隔嚢胞性リンパ管腫の報告例はほとんどない。¹ 本報では、胸部X線撮影、超音波検査、及びコンピューター断層によって観察された後横隔膜脚嚢胞性リンパ管腫について報告する。

症例報告, MF

この66歳の無症状の男性は、通常胸部撮影で後縦隔腫瘍像を示した。この男性に外傷歴や手術歴はない。触診では、リンパ節の腫脹は認められなかった。10年前の経口胆嚢造影法では、第12胸椎の位置に左旁脊椎筋部の肥厚を認めている(図1a)。胸部の背腹方向立体撮影及び左側方向撮影により、T11, T12, L1の左側に直径7cmの円形腫瘍を認めた(図1b及び

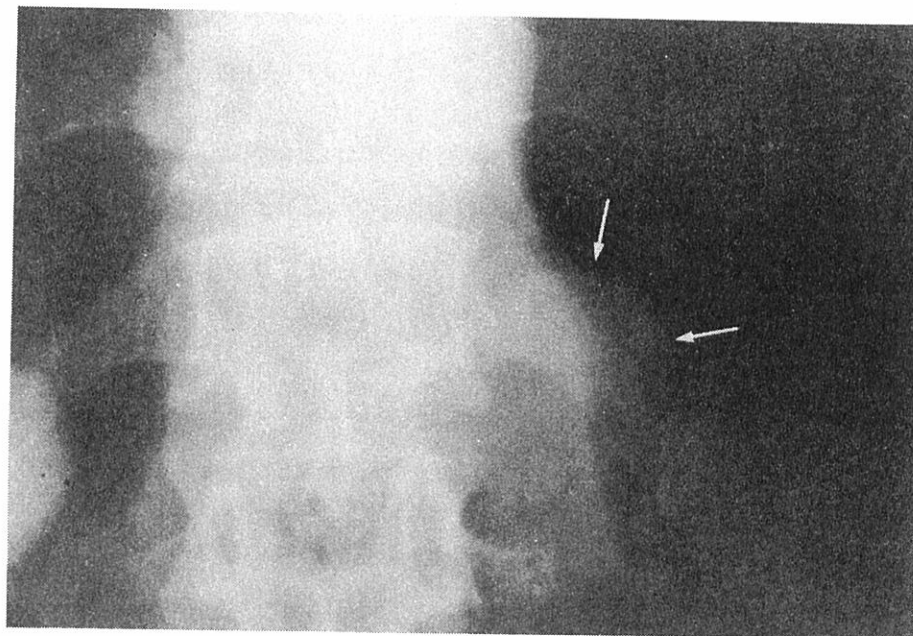


Figure 1a. Anteroposterior abdominal radiograph from an oral cholecystogram in 1973 shows widening of the left paraspinal contour (arrows) near the 12th thoracic vertebra.

図1a 経口胆嚢造影法を用いた腹背方向腹部放射線撮影(1973年)により、第12胸椎付近に左旁脊椎輪郭(矢印)の肥大が示された。

L1 (Figures 1b and c). Anteroposterior (AP) tomograms showed a large posterior mediastinal mass extending retroperitoneally, compressing and slightly displacing the left kidney laterally and the left crus of the diaphragm anterolaterally. This crus was visualized between the mass and the spleen in the AP tomogram (Figure 1d).

Subsequent ultrasonography revealed a unilocular cystic mass above the left kidney (Figure 2).

Computed tomography showed a large mass resulting in low attenuation adjacent to the thoracolumbar region (Figure 3). The left crus of the diaphragm was markedly displaced anterolaterally by the mass. The attenuation of this mass varied between 10 and 40 Hounsfield units (HU) on the noncontrast scans, but with contrast, it appeared to be a cyst with a relatively thin wall. Necrotic lymphadenopathy can be differentiated by the appearance, the mass being anechoic ultrasonographically. No other lymphadenopathy was detectable by computed tomography of the abdomen.

c). 腹背方向断層は、大きな後縦隔腫瘍が後腹膜に拡大し、左腎と横隔膜の左脚が圧排され、それぞれ外側と前外側にわずかに変位していることを示した。この左脚は腹背方向断層で、腫瘍と脾臓の間に描出された(図1d)。

続いて行った超音波検査では、左腎の上部に単房性の嚢胞性腫瘍が認められた(図2)。

コンピューター断層で、減衰度の低い大きな腫瘍が胸腰部付近に認められた(図3)。横隔膜の左脚は、腫瘍によって著しく前外側に変位していた。この腫瘍の減衰度は、非コントラスト・スキャンでは、10~40 Hounsfield ユニット(HU)の間を示したが、コントラスト・スキャンでは、この腫瘍は比較的薄い壁をもつ嚢胞であると思われた。壊死性リンパ節腫脹は、超音波検査上無エコーの様相であることから鑑別された。他のリンパ節腫脹は、腹部コンピューター断層では探知されなかった。

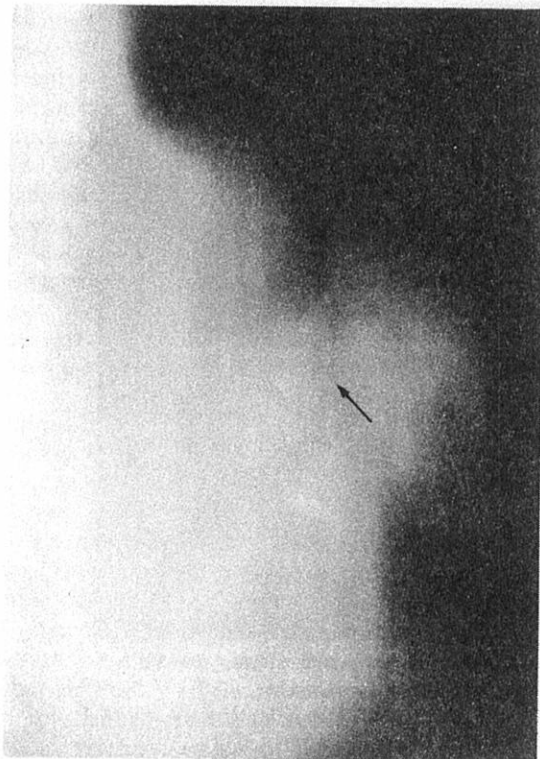
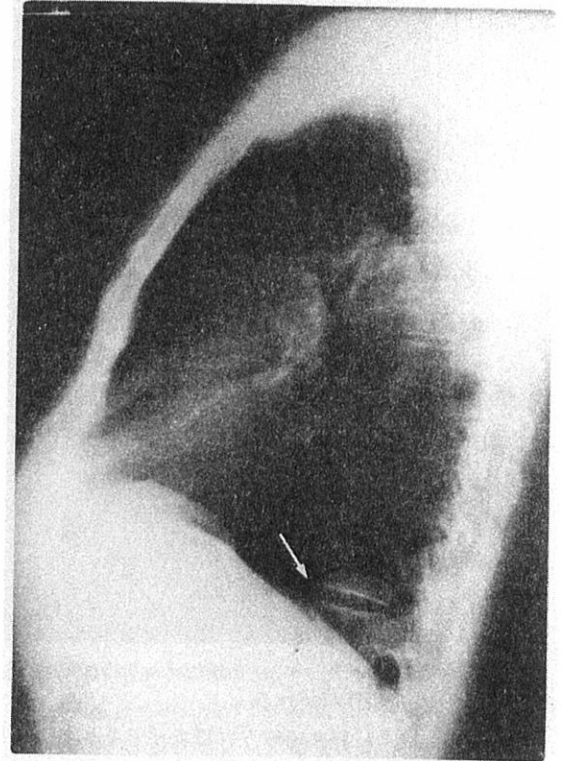
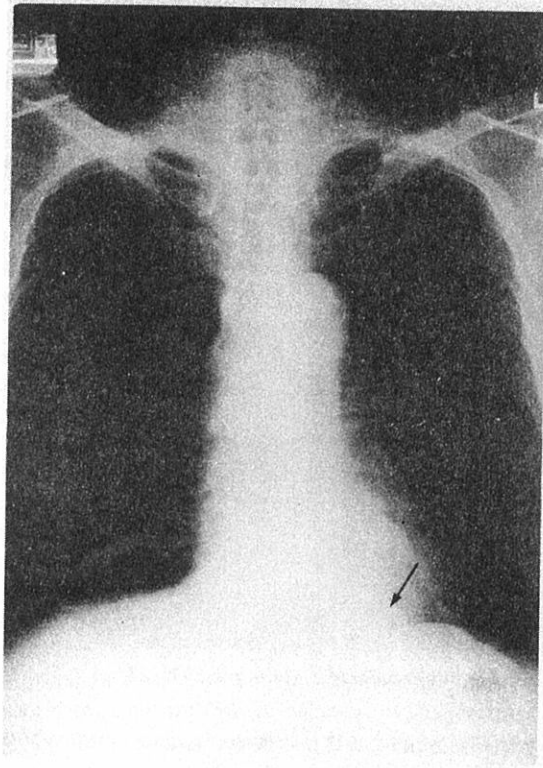


Figure 1b. Posteroanterior chest radiograph of 1983 shows marked widening of the left paraspinal musculature (arrow).

図1b 背腹方向胸部放射線撮影(1983年)により、左旁脊椎筋系(矢印)の著しい肥大が示された。

Figure 1c. Left lateral chest radiograph shows a posterior mediastinal mass (arrow).

図1c 左側胸部放射線撮影により、後縦隔腫瘍(矢印)が認められた。

Figure 1d. Anteroposterior tomogram shows a large mass adjacent to the thoracolumbar spine. The left crus of the diaphragm (arrow) is visualized between the mass and the spleen.

図1d 腹背方向断層撮影により、胸腰椎付近に大きな腫瘍が示された。横隔膜の左脚(矢印)が腫瘍と脾臓の間に描出されている。

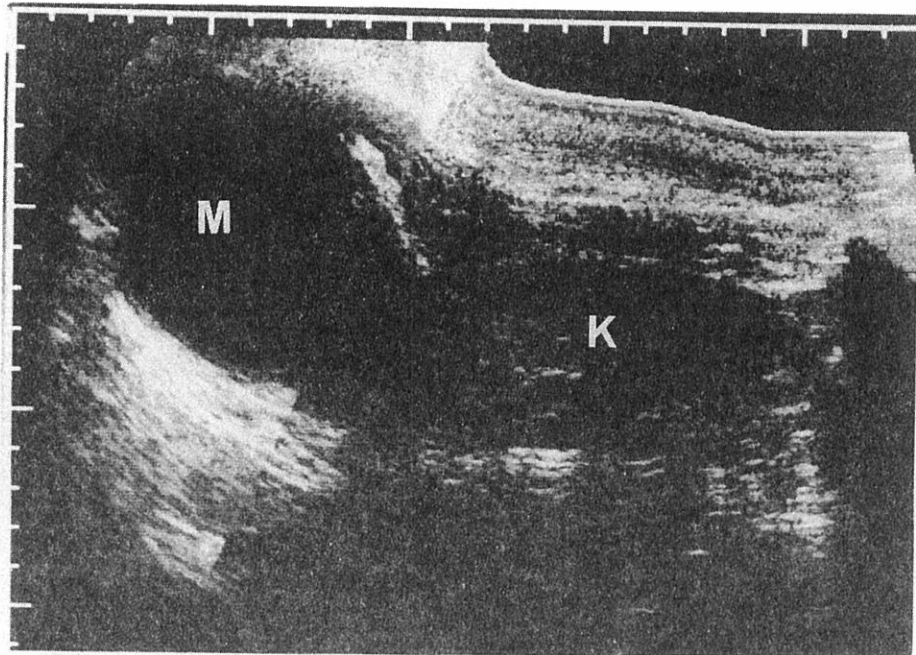


Figure 2. Prone longitudinal ultrasonographic scan shows a unilocular cystic mass (M) above the left kidney (K).

図2 腹臥位縦方向超音波スキャンにより、左腎の上部(K)に単房性の嚢胞性腫瘍(M)が示された。

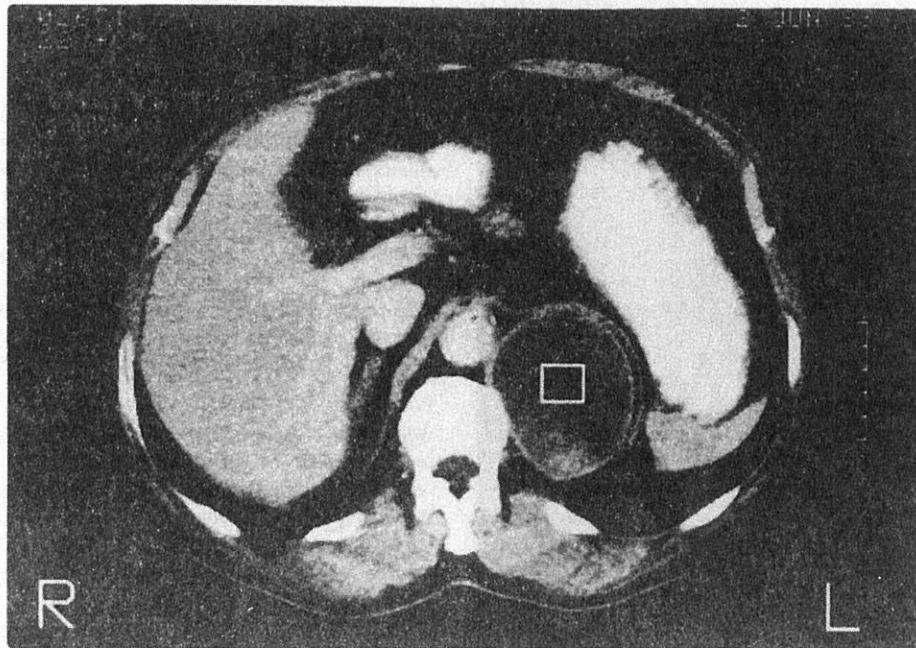


Figure 3. Computed tomography. At the level of the second lumbar vertebra shows a left retrocrural cystic mass displacing the left crus of the diaphragm anterolaterally.

図3 コンピューター断層撮影. 第2腰椎の位置に、横隔膜の左脚を前外側に変位させている後横隔膜左脚嚢胞性腫瘍が認められる。

Ultrasonographically guided percutaneous aspiration yielded chylous fluid, confirming this mass to be a cystic lymphangioma. Thoracotomy was not performed because the mass was confirmed to be benign, and the patient was asymptomatic. He is being followed radiologically, including ultrasonography.

DISCUSSION

Lymphangioma has been classified histologically as simple, cavernous, or cystic.² Cystic lymphangiomas are considered lymphatic hamartomas rather than true neoplasms.² They may be unilocular or multilocular cysts, and the cysts contain serous or chylous fluid.^{3,4} Cystic lymphangiomas are uncommon; 75% occur in the neck, 20% in the axilla; the remaining 5%, in the mediastinum, omentum, pelvis, groin, spleen, bone, and skin.⁵ Purely mediastinal cystic lymphangiomas comprise less than 1% of the total.⁴ Posterior mediastinal cystic lymphangiomas are especially rare; they comprise less than 10% of all mediastinal cystic lymphangiomas.^{1,4} To our knowledge, there have been no published reports of the ultrasonographic and computed tomographic manifestations of posterior mediastinal cystic lymphangiomas. Several reports have described computed tomographic evaluations of images of retrocrural spaces and lesions including retrocrural air,⁶ pleural fluid,⁷ lymphomas,⁸ neurofibromatosis,⁸ and enlarged lymph nodes.⁹ The crura in these cases were displaced anterolaterally. The left crus of the present case was displaced anterolaterally by the tumor in the retrocrural space. Figure 2 shows that the tumor originated in the paravertebral region at the level of the 12th thoracic vertebra. This strongly suggests that the tumor was in the retrocrural space because, anatomically, the left crus originates from parts of the first two lumbar segments.^{6,10}

Normally, the retrocrural space is nearly completely enveloped by fatty tissue. It contains the aorta, the azygos and hemiazygos veins, nerves, lymph nodes, and cisterna chyli — the origin of the thoracic duct.^{6,9} The tumor of the patient described here could have arisen from the cisterna chyli or the thoracic duct. Cystic lymphangiomas can be confirmed by virtue of the fact that they are filled with chylous fluid.¹¹ Percutaneous aspiration of the tumor in the patient described here proved it to be a cystic lymphangioma. Large lymphangiomas

超音波検査下に行われた経皮的吸引によって乳糜液が得られ、この腫瘍が嚢胞性リンパ管腫であることが確認された。この腫瘍は良性であることが確認され、患者は無症状であったため、開胸は行われなかった。この患者は超音波検査を含む放射線学的検査で追跡調査されている。

考 察

リンパ管腫は組織学的に単純性、海綿状、あるいは嚢胞性に分類されてきた。² 嚢胞性リンパ管腫は、真性の新生物よりもむしろリンパ管の過誤腫とみなされている。² それらは単房性、あるいは多房性の嚢胞であり、その嚢胞には漿液か乳糜液が含まれている。^{3,4} 嚢胞性リンパ管腫はまれで、その75%は頸部、20%は腋窩に発生し、残り5%は縦隔、大網、骨盤、鼠径部、脾臓、骨、皮膚に発生する。⁵ 純性の縦隔嚢胞性リンパ管腫は全体の1%以下である。⁴ 後縦隔嚢胞性リンパ管腫は特にまれで、縦隔嚢胞性リンパ管腫全体の10%以下である。^{1,4} 我々の知る限りでは、後縦隔嚢胞性リンパ管腫の超音波検査及びコンピューター断層による所見の報告が発表されたことはない。後横隔膜脚内空気、⁶ 胸水、⁷ リンパ腫、⁸ 神経線維腫症、⁸ リンパ節肥大⁹ を含む後横隔膜脚の腔と病変の画像をコンピューター断層で評価した報告は幾つかある。これらの症例の横隔膜脚は前外側に変位していた。本症例の左脚も、後横隔膜脚腔の腫瘍によって前外側に変位していた。図2は、第12胸椎の旁脊椎部に発生した腫瘍を示している。解剖学的に、左脚は最初の二つの腰椎分節から生じることから、^{6,10} これは腫瘍が後横隔膜脚腔にあることを強く示唆している。

通常、後横隔膜脚腔はほぼ完全に脂肪組織に包まれている。この腔には、大動脈、奇静脈及び半奇静脈、神経、リンパ節、胸管の起点である乳糜槽が含まれている。^{6,9} 本報で述べた患者の腫瘍は、乳糜槽か胸管から発生した可能性がある。嚢胞性リンパ管腫はそれが乳糜液で満たされていることで、確認される。¹¹ 本報で述べた患者の腫瘍に対して行われた経皮的吸引により、この腫瘍が嚢胞性リンパ管腫であることが判明した。大きなリンパ管腫はしばしば胸管

are often associated with apparent obliteration of the thoracic duct.⁴

Recently Pilla et al¹² have reported computed tomographic evaluations of superior and anterior mediastinal cystic lymphangiomas. To our knowledge, this is the first published report of ultrasonographic and computed tomographic evaluations of a retrocrural cystic lymphangioma. The variable attenuation of this tumor using non-contrast computed tomography is consistent with reported findings of cystic lymphangiomas.^{12,13}

の閉塞に伴って起こる。⁴

最近, Pilla ら¹² は, 上縦隔及び前縦隔嚢胞性リンパ管腫のコンピューター断層評価に関する報告を行った. 我々の知る限りでは, これが後横隔膜脚嚢胞性リンパ管腫の超音波, 及びコンピューター断層による評価に関する最初の報告である. 非造影コンピューター断層を用いて調べたこの腫瘍の様々な減衰度は, 嚢胞性リンパ管腫に関して報告された所見と一致している.^{12,13}

REFERENCES

参考文献

1. YACOUB MH, LISE M: Intrathoracic cystic hygromas. *Br J Dis Chest* 63:107-11, 1969
2. ANDERSON WAD, KISSANE JM: Pathology. St. Louis, C. V. Mosby, 1977. pp917, 1151
3. HENZEL JH, PORIES WJ, BURGET DE, SMITH JL: Intra-abdominal lymphangiomas. *Arch Surg* 93:304-8, 1966
4. FEUTZ EP, YUNE HY, MANDELBAUM I, BRASHEAR RE: Intrathoracic cystic hygroma. A report of three cases. *Radiology* 108:61-6, 1973
5. REKHI BM, ESSELSTYN CB Jr, LEVY I, MERCER RD: Retroperitoneal cystic lymphangioma. Report of two cases and review of the literature. *Cleve Clin Q* 39:125-8, 1972
6. SILVERMAN PM, GODWIN JD, KOROBKIN M: Computed tomographic detection of retrocrural air. *AJR* 138:825-7, 1982
7. DWYER A: The displaced crus: A sign for distinguishing between pleural fluid and ascites on computed tomography. *J Comput Assist Tomogr* 2:588-9, 1978
8. BORLAZA GS, KUHNS LR, SEIGEL RS, RAPP R: The posterior pararenal space: An escape route for retrocrural masses. *J Comput Assist Tomogr* 3:470-3, 1979
9. CALLEN PW, KOROBKIN M, ISHERWOOD I: Computed tomographic evaluation of the retrocrural prevertebral space. *Am J Roentgenol* 129:907-10, 1977
10. MEYERS MA: Dynamic Radiology of the Abdomen, 2nd ed. New York, Springer-Verlag, 1982. pp1-2
11. RADIN R, WEINER S, KOENIGSBERG M, GOLD M, BERNSTEIN R: Retroperitoneal cystic lymphangioma. *AJR* 140:733-4, 1983
12. PILLA TJ, WOLVERSON MK, SUNDARAM M, HEIBERG E, SHIELDS JB: CT evaluation of cystic lymphangiomas of the mediastinum. *Radiology* 144:841-2, 1982
13. PYATT RS, WILLIAMS ED, CLARK M, GASKINS R: Case report. CT diagnosis of splenic cystic lymphangiomas. *J Comput Assist Tomogr* 5:446-8, 1981