

●症 例

腹部大動脈瘤術後に乳糜胸水と腹壁の乳糜液貯留を認めた1例

大谷 俊人 山根真由香 大成洋二郎

要旨：症例は69歳，男性．腹部大動脈瘤術と臍ヘルニアの術後1年目に，胸部X線写真で右側の胸水貯留を指摘され入院した．胸水穿刺では胸水中のトリグリセリドが高値であり，乳糜胸と診断した．また，腹水はないものの同時に腹部正中の開創部の腹壁直下にも液体貯留を認め，穿刺したところ乳糜液であった．脂肪制限食を開始したところ乳糜液貯留のコントロールは良好であった．乳糜胸水と腹壁に乳糜液の貯留を同時に認めた症例の報告はこれまでになく，腹部大動脈瘤による胸管の圧排に伴う側副路の発達の影響が大きいと考えられた．

キーワード：腹部大動脈瘤，乳糜胸，乳糜腹水，保存的治療

Abdominal aortic aneurysm, Chylothorax, Chylous ascites, Conservative treatment

緒 言

乳糜胸水は，腸管から胸管へ流れるリンパ液である乳糜が胸管もしくはその分枝の閉塞，破綻によって胸腔内に貯留した状態をいう．今回我々は，腹部大動脈瘤の術後1年で乳糜胸水と腹壁の乳糜液貯留を認めた1例を経験した．乳糜胸水と腹水の貯留を合併した症例は散見され，本症例のように乳糜腹水を認めず乳糜胸水と腹壁への乳糜液貯留を同時にきたした症例は，我々が検索した範囲内で報告されていない．非常に貴重で腹部大動脈瘤が関与したと考えられる，乳糜胸水と乳糜腹壁水の貯留をきたした稀有な症例として，ここに報告する．

症 例

患者：69歳，男性．

主訴：呼吸困難．

既往歴：慢性心不全，慢性腎不全，発作性心房細動，2型糖尿病．

家族歴：母が子宮体癌．

生活歴：喫煙歴20本/日×45年間，飲酒歴なし．偏食が多くマーガリンが好物である．

アレルギー歴：特記すべきことはない．

現病歴：慢性心不全，慢性腎不全で近医に通院してい

た．1年前に直径73mmの腎動脈下腹部大動脈瘤と臍ヘルニアに対して人工血管置換術と臍ヘルニア修復術を受け，以後徐々に倦怠感と労作時の息切れを認めた．今回，両側の下腿浮腫と3ヶ月間で10kgの体重増加も認めたため，近医を受診した．その際施行した胸部X線撮影で右側の胸水貯留が疑われ，原因精査目的で当科に紹介となり，精査加療目的に入院した．

入院時現症：身長161cm，体重92kg，BMI35kg/m²，意識清明，体温36.5℃，血圧158/80mmHg，脈拍数69/min，呼吸数16/min，経皮的動脈血酸素飽和度（SpO₂）96%（room air，自発呼吸）．胸部：右下肺野呼吸音減弱，心音に明らかな異常はない．腹部正中は膨隆し，手術瘢痕を認める．同部の発赤，腫脹や熱感はない．四肢：両側下腿浮腫を認める．

入院時血液検査・尿検査所見（表1）：血液検査では白血球数は正常範囲内，CRPやPCTの上昇も軽度であった．Crは以前と同じく1.7mg/dl程度で推移している．CEAやCYFRAは正常範囲内であった．

画像所見：胸部X線写真（図1A）では右のCP angleがdullで，右中肺野末梢側に円形のconsolidationを認める．胸部単純CT（図1B）：胸部X線写真で円形にみえたconsolidationは葉間胸水であり，背側にも胸水貯留を認めた．腹部単純CT（図1C）：手術瘢痕の直下に紡錘状の形態を呈する低吸収域（矢印）を認めた．

入院後経過：入院後胸水穿刺を行ったところ，混濁した乳黄色の液体620mlの排液を得た（図1D）．一般細菌培養や抗酸菌培養は陰性であり，細胞診でも異型細胞はなく悪性を疑うような所見は認めなかった．胸水中のトリグリセリド（TG）の上昇（表1）を認めたことから乳

連絡先：大谷 俊人

〒735-0017 広島県安芸郡府中町青崎南2-15

マツダ病院呼吸器内科

(E-mail: otani.tos@mazda.co.jp)

(Received 23 Apr 2016/Accepted 3 Apr 2017)

表1 入院時血液検査と胸水、腹壁の貯留液の組成

A. 入院時血液検査

WBC	5,650/ μ l	T-Bil	0.6 mg/dl	血糖	113 mg/dl
Neut	75.7%	AST	18 IU/L	HbA1c	6.3%
Lym	14.7%	ALT	8 IU/L	CEA	1.99 ng/ml
Mon	5.7%	LDH	260 IU/L	CYFRA	2.3 ng/ml
Eos	3.4%	TP	6.8 g/dl	sIL-2R	914 U/ml
Bas	0.5%	ALB	3.4 g/dl	BNP	29.5 pg/ml
RBC	414×10^3 / μ l	BUN	21.7 mg/dl		
Hb	11.6 g/dl	Cr	1.72 mg/dl		
Hct	37.6%	Na	139.6 mEq/L		
MCV	90.8 fl	K	4.2 mEq/L		
Plt	18.3×10^4 / μ l	Cl	105.9 mEq/L		
		PCT	0.11 ng/ml		
PT	14.2 s	CRP	0.53 mg/dl		
PT%	59.4%	TC	146 mg/dl		
PT-INR	1.33	TG	106 mg/dl		
APTT	38.1 s	HDL-C	50 mg/dl		
Fib	464 mg/dl	LDL-C	90 mg/dl		

B. 胸水

血糖	115 mg/dl
総蛋白	4 g/dl
LDH	106 IU/ml
細胞数	658/ μ l
ADA	10.1 mg/dl
TG	737 mg/dl
TC	72 mg/dl
HDL-C	12 mg/dl
LDL-C	5 mg/dl
CEA	10 μ g/dl

C. 腹壁の液体貯留

血糖	124 mg/dl
総蛋白	4 g/dl
LDH	182 IU/ml
細胞数	406/ μ l
ADA	15.3 mg/dl
TG	145 mg/dl
TC	78 mg/dl
HDL-C	8 mg/dl
LDL-C	27 mg/dl
CEA	0.86 ng/dl

糜胸水と診断した。低脂肪食を開始するとともに、腹壁の液体貯留に対して第6病日に腹壁下膿瘍も疑い穿刺を行ったところ、赤白色の液体(図1E)を認めた。細菌培養は陰性であったが、TGの上昇(表1)を認めたため乳糜液と診断した。その後は胸部X線写真で胸水の増加がなかったため、本人と相談し胸腔ドレナージや外科的介入は行わず保存的に経過をみる方針として第12病日に当科を退院した。

外来での経過観察でも、食事療法のコンプライアンスによって多少の増減はあるものの胸水のコントロールは良好(図2)で、息切れや咳嗽などの臨床症状も認めなかった。体重の増加もなく、下腿浮腫の悪化も認めなかった。腹部単純CTを再検した際も腹壁の液体貯留も特に変化を認めず、悪性腫瘍を疑うような腫瘤影やリンパ節腫大なども認めていない。

考 察

乳糜胸水は、胸水中のTGが110 mg/dl以上、もしくはTG 50~110 mg/dlであれば胸水リポ蛋白分画でカイ

ロミクロンが検出されることで、診断される。エーテル添加での透明化やSudan III染色で脂肪滴が染色されることも、診断に有用である。分類はBessoneの分類¹⁾が有名であり、先天性、手術後外傷性、非手術後外傷性、非外傷性に分けられる。病因としてはDoerrらによると外傷性が50%、非外傷性が44%を占めるとされる²⁾。外傷性には頸部や胸部の手術や交通外傷、激しい咳嗽などが、非外傷性には悪性腫瘍、リンパ腫、リンパ脈管筋腫症、肝硬変、サルコイドーシス、キャッスルマン病などがある。乳糜胸水は主に胸管の破綻によって生じ、乳糜腹水の胸腔への移行によって生じることもある。解剖学的には胸管は乳糜槽から横隔膜の大動脈裂孔を通り第5胸椎レベルに至るまで大動脈と奇静脈の間を上行したのちに、食道の後ろを通り左後縦隔に入り左静脈角に注ぐ³⁾。胸腔内での第5胸椎以下での胸管の破綻により右側の乳糜胸水が出現するといわれており、胸管を流れる1日のリンパ液の量は1,500~2,400 ml/日とされる⁴⁾。

一般に乳糜胸水が持続すると免疫グロブリン、リンパ球、蛋白、脂溶性ビタミンが漏出し、免疫不全、低栄養、

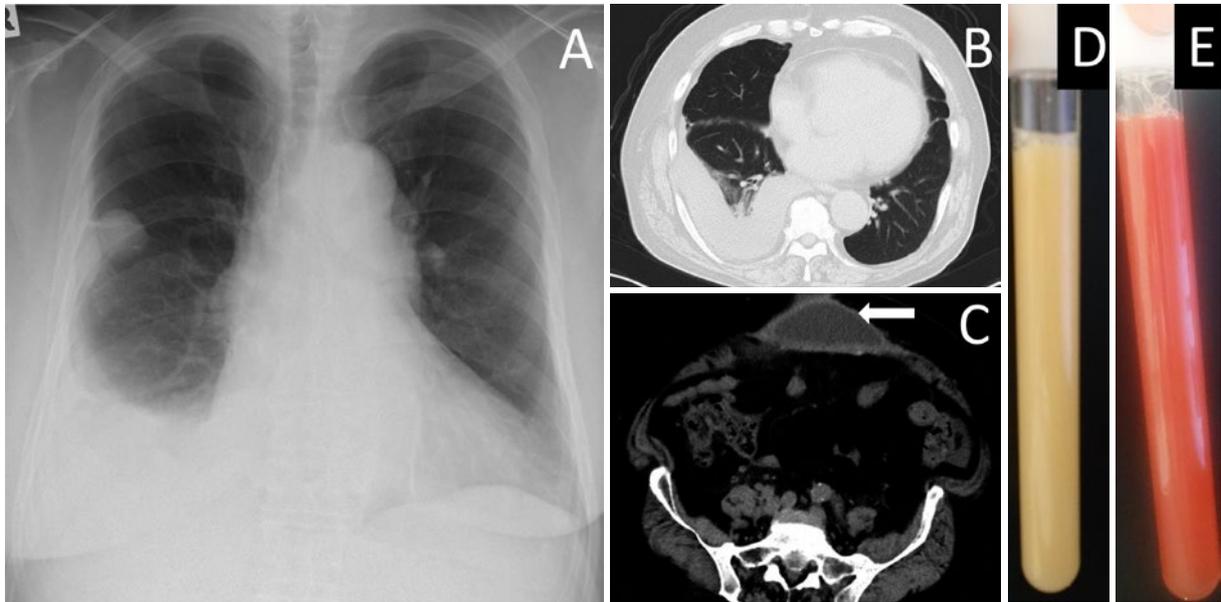


図1 入院時胸部X線写真 (A) と胸部単純CT (B). 右側の胸水貯留を認める. (C) 腹部単純CT. 腹壁下に紡錘状の低吸収域 (矢印) を認める. (D) 右胸水穿刺で得られた排液. (E) 腹壁の低吸収域に対し穿刺を行い得られた排液.

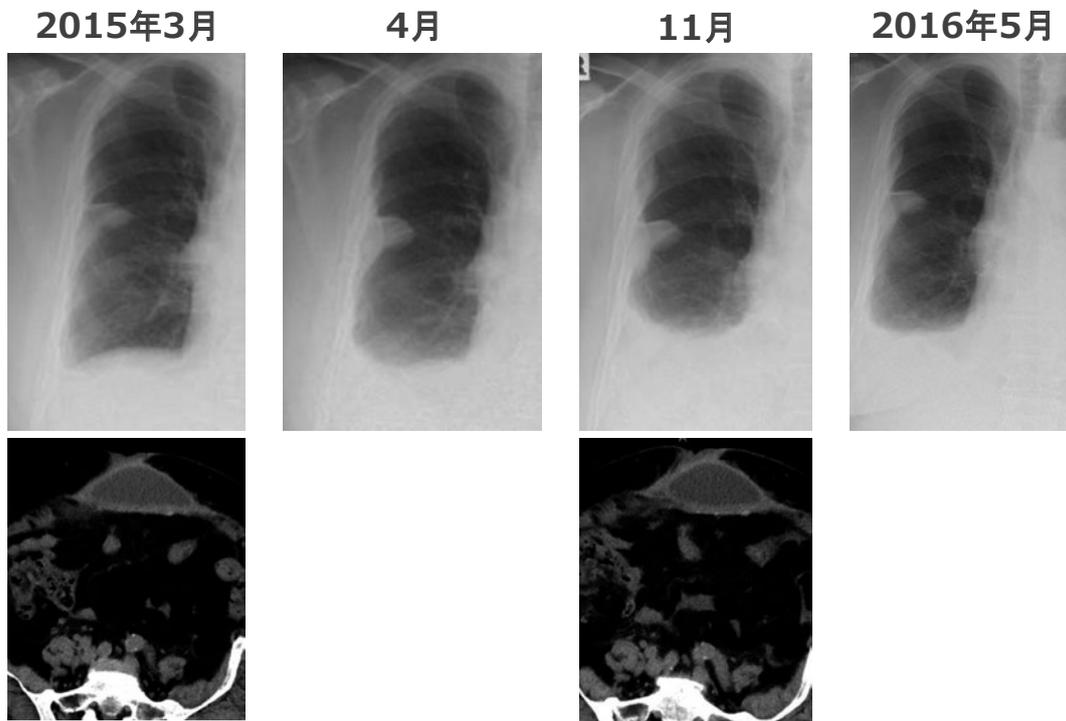


図2 乳糜胸水と腹壁の乳糜液の推移

循環血漿量の低下を招くため、治療が必要となる。治療は大きく保存的治療と外科的治療に分けられ、保存的加療では脂肪制限食、中鎖脂肪酸の摂取や胸膜癒着術が行われる。外科的治療は胸管結紮術が行われ、適応についてはSelleらの基準があり⁵⁾、成人で1.5L/日以上乳糜漏出が5日以上持続する場合や保存的治療を2週間行っ

ても減少しない場合、また栄養状態が悪化した場合に適応となる。

一方、非外傷性乳糜胸であれば原疾患の治療が最も重要とされ、サルコイドーシスではステロイド、悪性腫瘍では化学療法、リンパ脈管筋腫症ではシロリムス (sirolimus) が有効⁶⁾⁷⁾とされる。また、その他の内科的治療と

してオクトレオチド (octreotide)⁸⁾⁹⁾の有用性も報告されている。

本症例は術後外傷性の乳糜胸水と考えられるが、胸部の手術である肺切除後でも乳糜胸水の発症頻度は0.5%¹⁰⁾といわれ、比較的まれである。乳糜胸腹水を同時に認める例は肝硬変やネフローゼ症候群の症例で少ないながら散見されるが、腹部大動脈瘤術後に乳糜胸腹水を認める症例はほとんどない¹¹⁾。まして今回のように、腹部大動脈瘤術後に腹水貯留を伴わず乳糜胸水と腹壁に乳糜液貯留を認めた症例は過去に報告がなく、非常に貴重な症例である。

本症例の乳糜胸水の機序にはさまざまな可能性が考えられる。術後に発症したことから、直接的な胸管の損傷の影響も検討したが、胸腔内操作は本症例では行われておらず、腹水貯留も認めなかった。また、直接的な胸管損傷であれば食事療法のみでのコントロールは困難だと考えられ、その可能性は低いと考えた。直接損傷以外の乳糜胸水の症例報告について検討したところ、頸部郭清術中の胸管損傷に対して胸管結紮を施行した後に乳糜胸を生じたという報告¹²⁾があった。この報告では胸管結紮による内圧上昇により胸管へ連なるリンパ管内を乳糜液が逆流し、胸膜から漏出したとの機序を考えており、その根拠にリンパ管シンチグラフィで両足背より皮下注入した^{99m}Tc-rhenium colloidが1時間後には乳糜槽から上行し、縦隔内を満たすことなく胸腔内に移行したことを挙げていた。このような症例報告を踏まえ、我々は本症例の乳糜胸水貯留の機序として、①術前は大動脈瘤により胸管が圧排されリンパ液がうっ滞し、リンパ管の側副路が発達する一方で胸管が萎縮、②術後胸管の圧排が解除され、偏食により多量のリンパ液が胸管に流入、③流入したリンパ液の圧で胸管が破綻、もしくは一部が胸管から胸膜のリンパ管へ逆流、④乳糜液が胸腔内に貯留、との流れを考えた。腹壁の乳糜液の貯留も同様に、胸管から側副路を介し腹壁のリンパ管から乳糜液が漏出したと考えている。開腹による直接的な腹壁のリンパ管の損傷や創部の脆弱化に加え、もともと臍ヘルニアがあり肥満で腹圧が高く、術後にメッシュを留置していることなども複合的に作用したと思われる。胸管と側副路の関係についてはRossら¹³⁾の報告がある。奇静脈、肋間静脈、腰静脈などとの間に胸管は側副循環を持つとされ、胸管内圧の上昇は静脈系との吻合の多寡と関連している。本症例では、術前に発達していた大動脈瘤を越える側副路と、術後に逆流が起きた経路は異なると考えられ、圧がかかる部位が変わったため、静脈との吻合箇所が少ない所から漏出したと推察される。

本症例では同意が得られず施行できなかったが、リンパ管造影、リンパ管シンチグラフィや手術を行うことで

リンパ漏出部を特定できた可能性がある。リンパ管造影や足背放射性同位元素 (RI) 投与のリンパ管シンチグラフィは特に胸管の描出に優れ、乳糜液の貯留を引き起こした経路を確認できる。時系列を追い、先に縦隔内を満たすことなく胸腔内に移行する所見があれば、胸管損傷ではなく逆流による乳糜液の漏出がより強く疑われる。リンパ管造影では施行後に乳糜瘻が治癒したとの報告¹⁴⁾もあり、治療的にも試みる意義はある。そのほか、経口RI投与方法¹⁵⁾¹⁶⁾のリンパ管シンチグラフィもあり、胸管以外の小腸リンパ管などからの漏出の場合により有用である。これによりリンパ液の漏出が腸管由来かどうかを判断することができれば、治療における食事療法の重要性がより強調される。また、手術は胸膜や縦隔の線維化や漏出部の有無など肉眼的所見も得られ、非常に有用である。本症例でも悪化するようなら診断的にも治療的にもリンパ管造影、リンパ管シンチグラフィ、手術などを再提案する必要がある。

ただ、もちろん手術とは関連なく、偶然術後に発症した特発性乳糜胸である可能性は否定できない。しかし、術後早期に施行された単純CTで一部被包化された胸水と開創部の腹壁下に液体貯留を認めた。ともに穿刺されていないため性状は不明だが、陰影が類似しており術後早期の時点ですでに乳糜液が貯留していた可能性がある。両部位に乳糜液の貯留を同時期に認めた点からも、何らかの手術の影響があったと考えている。

我々は、乳糜腹水を認めず乳糜胸水と腹壁への乳糜液貯留とを同時にきたした、非常にまれな症例を経験した。腹部大動脈瘤に対する人工血管置換術や臍ヘルニア修復術が、乳糜胸水、腹壁への乳糜液貯留の原因となりうることを初めて報告した。術後に胸水貯留を認める場合は乳糜胸水の可能性も考え、積極的に穿刺する必要があると考える。

本論文の要旨は、日本呼吸器学会第54回中国・四国地方会(2015年12月、松江)で発表した。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) Bessone L, et al. Chylothorax. *Ann Thorac Surg* 1971; 12: 527-50.
- 2) Doerr C, et al. Etiology of chylothorax in 203 patients. *Mayo Clin Proc* 2005; 80: 867-70.
- 3) Doerr CH, et al. Chylothorax. *Semin Respir Crit Care Med* 2001; 22: 617.
- 4) Macfarlane JR, et al. Chylothorax. *Am Rev Respir Dis* 1972; 105: 287.

- 5) Selle JG, et al. Chylothorax: indications for surgery. *Ann Surg* 1973; 177: 245-9.
- 6) Taveira-DaSilva AM, et al. Changes in lung function and chylous effusions in patients with lymphangiomyomatosis treated with sirolimus. *Ann Intern Med* 2011; 154: 797.
- 7) 山内浩義, 他. シロリムスにより難治性乳糜胸腹水が制御できたリンパ管筋腫症の1例. *日呼吸誌* 2016; 5: 101-5.
- 8) Kalomenidis I. Octreotide and chylothorax. *Curr Opin Pulm Med* 2006; 12: 264.
- 9) Al-Zubairy SA, et al. Octreotide as a therapeutic option for management of chylothorax. *Ann Pharmacother* 2003; 37: 679.
- 10) Sarsam MA, et al. Postpneumectomy chylothorax. *Ann Thorac Surg* 1994; 57: 689-90.
- 11) Ly TY, et al. Images in clinical medicine. Chylothorax and chyloperitoneum. *N Engl J Med* 2005; 353: 616.
- 12) 柴 裕子, 他. 左頸部郭清術後の胸水貯留. *頭頸部腫瘍* 1989; 15: 165-9.
- 13) Ross JK. A review of the surgery of the thoracic duct. *Thorax* 1961; 16: 12-21.
- 14) 植村 守, 他. リピオドールリンパ管造影にて治癒した食道がん術後難治性乳糜胸水の1例. *日消外会誌* 2005; 38: 7-12.
- 15) Qureshy A, et al. Thoracic duct scintigraphy by orally administered I-123 BMIPP: normal findings and a case report. *Clin Nucl Med* 2001; 26: 847-55.
- 16) Kettner BL, et al. Scintigraphic localization of lymphatic leakage site after oral administration of iodine-123-IPPA. *J Nucl Med* 1998; 39: 2141-4.

Abstract

A case of chylothorax with chylous effusion just below the abdominal wall after surgery of abdominal aortic aneurysm

Toshihito Otani, Mayuka Yamane and Yojiro Onari
Department of Respiratory Medicine, Mazda Hospital

A 69-year-old man presented at a local clinic because of shortness of breath. He was found to have pleural effusion and was referred to our hospital for further evaluation. An examination of pleural effusion revealed a milky-white, chylous fluid with increased triglycerides. He had a surgical history of abdominal aortic aneurysm a year ago. Computed tomography of the abdomen revealed to have a low density area just below the abdominal wall. A needle aspiration of this lesion revealed a milky fluid with a high concentration of triglyceride. These effusions were resolved by adherence to a low-fat-diet. The influence of the development of collateral channels associated with the exclusion of the thoracic duct according to an abdominal aortic aneurysm was considered large.