

原 著

乳び胸腹水を止める可能性、低侵襲小児リンパ外科： リンパ流の病態生理に基づく外科治療

加藤 基¹⁾, 渡邊 彰二¹⁾, 野村 耕司²⁾, 黄 義浩²⁾, 木南 寛造²⁾, 小川 潔³⁾,
星野 健司³⁾, 菱谷 隆³⁾, 河内 貞貴³⁾, 川嶋 寛⁴⁾, 田波 穂⁵⁾

¹⁾埼玉県立小児医療センター形成外科リンパ外来

²⁾埼玉県立小児医療センター心臓血管外科

³⁾埼玉県立小児医療センター循環器科

⁴⁾埼玉県立小児医療センター外科

⁵⁾埼玉県立小児医療センター放射線科

Possibility to Terminate Chylothorax/Abdomen by Minimum Invasive Pediatrics Lymph Surgery: A Surgical Strategy Based on the Etiology of the Lymph Flow

Motoi Kato¹⁾, Shoji Watanabe¹⁾, Koji Nomura²⁾, Yoshihiro Ko²⁾, Hiroo Kinami²⁾, Kiyoshi Ogawa³⁾, Kenji Hoshino³⁾, Takashi Hishitani³⁾, Sadatake Kawachi³⁾, Hiroshi Kawashima⁴⁾, and Yutaka Tanami⁵⁾

¹⁾Saitama Children's Medical Center, Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Saitama, Japan

²⁾Saitama Children's Medical Center, Department of Cardiovascular Surgery, Saitama, Japan

³⁾Saitama Children's Medical Center, Department of Cardiology, Saitama, Japan

⁴⁾Saitama Children's Medical Center, Department of Surgery, Saitama, Japan

⁵⁾Saitama Children's Medical Center, Department of Radiology, Saitama, Japan

Introduction: Chylothorax/abdomen can lead to prolonged hospitalization, cause developmental delays, and sometimes become fatal. Therefore, the development of a new therapy has been investigated. Owing to the rapidly expanding knowledge about central lymphatic disease, the etiology of chylothorax/abdomen has been found to be recurrent and to leak due to lymphatic stenosis or obstruction. These lymphatic problems are similar to those in peripheral lymphatic disease, for which we analyzed the lymphatic flow and treated it with direct maneuver. Based on this, we have introduced minimally invasive procedures to correct the central lymphatic system.

Material and Methods: We included 12 pediatric patients aged 30 days to 2 years. Five patients were diagnosed with hereditary diseases other than cardiac anomalies. All patients were followed for >6 months after the lymphatic procedures were performed. Medical treatment was preoperatively given for ≥4 weeks and with diet/milk restrictions.

Results: Four patients were completely cured from lymphatic leakage, three patients required further treatment, and five patients died during intensive care, mainly because of respiratory distress.

Conclusion: Lymphangiography and lymphatic venous anastomosis are the most commonly performed procedures that are effective in some patients. This novel treatment remains limited to patients with complications. However, the new therapy that is based on the lymphatic flow analysis may become a novel approach for refractory chylothorax/abdomen. Therefore, studies on lymphatic disease are ongoing and further improvements are expected in the future.

Keywords: chylothorax, chyloabdomen, lymph surgery, flow oriented, minimum invasive

2017年11月20日受付、2018年3月5日受理

著者連絡先：〒330-8777 埼玉県さいたま市中央区新都心1-2 埼玉県立小児医療センター形成外科リンパ外来 加藤 基

doi: 10.9794/jspccs.34.135

背景：術後及び先天性乳び胸腹水は入院期間の延長や成長障害だけでなく致死的となることがあり、新たな治療の開発は急務である。リンパ管疾患の病態理解により乳び胸腹水は中枢リンパ管系統の破綻が原因であり、体表リンパ管疾患と類似していることが明らかとなった。

方法・対象：2014年4月～2016年10月の間に当科で治療を行った生後25日から2歳の連続した12例を対象とし、後方視的検討を行った。いずれも保存加療で難治であり病態に合わせてリンパ管造影法またはリンパ管静脈吻合術を行った。

結果：4例で胸水・腹水は完全に停止した。3例は追加で治療を要したもの、部分的に治療効果が確認できた。5例は経過中に呼吸不全などをきたし死亡した。

考察：われわれは体表リンパ管疾患の治療で育んだリンパ流の評価・再建法を応用した低侵襲外科治療を行った。重症例では未だ治療効果は限られているが、リンパ流の改善という病態に立脚した新たな治療の可能性が示唆された。過渡期にあるリンパ外科的治療は今後さらなる発展が期待される。

背景

術後および先天性乳び胸水・腹水は入院期間の大幅な延長や、成長障害につながる¹⁾。また病態の把握が難しく、内科的・外科的な集学的治療を尽くしても治療に難渋することが少なくない。多くの施設で同様の経過を認め、自然軽快に期待して経過観察することがしばしば見られる。近年めざましく発展してきたリンパ管疾患への検査や治療から病態への理解が進み、数々の技術革新を経てリンパ管が直接手術できるようになってきた。これまで治療困難とされてきた難治性リンパ管疾患の中には治癒に至る症例が散見されている。われわれは成人領域で培ったリンパ管疾患の検査・治療方法と小児領域における集中治療の専門知識をチームアプローチで融合し、リンパ流再建を目的とした専門的外科治療を行っている。この日進月歩なりんぱ管疾患領域に対してわれわれが行ってきた治療方針と術後経過について後方視的に検討した。世界的な潮流も含めた現在の治療方針とこれからの乳び胸腹水・リンパ管疾患の方向性について考察する。

方法

2014年4月以降、われわれが診療を行い6か月以上の経過観察を行った患者12名を対象とした。いずれも4週以上の内科治療で効果が限定的であったために外科治療を要した患児である。日齢30日～2歳（平均月齢9か月、中央値8か月）、男女比6:6、うち5名は心疾患以外の基礎疾患があった（21 trisomy 3名、難治性水頭症1名、Noonan症候群1名）。単心室、極型Fallot四徴症、Ebstein奇形などの重症先天性心疾患が多く含まれている（Table 1）。リンパ流の検査・治療として主にリンパ管造影法（インドシアニングリーン（ICG）、リピオドール[®]（LG））、リンパ

管静脈吻合術（LVA）を施行した。治療法の選択として右左シャントがない場合にリピオドールリンパ管造影法を行い、右左シャントを有する場合や先天性を疑う場合・浮腫を伴う症例にはリンパ管静脈吻合術を適応とした（Fig. 1）。手術は全例、全身麻酔下に行った（Total IntraVenous Anesthesia: TIVA）。ICG、LG、LVAはいずれも当院倫理委員会で認可を得て施行した。

インドシアニングリーン蛍光造影法

ジアグノグリーン[®]・注射用液25mg（第一三共、日本）を付属の溶液または5%ブドウ糖液10mLで希釈し、足背、手背に各1箇所ずつ、0.05mLを皮下注射する。注射後、赤外線カメラを用いて体表をくまなく観察する。線状のリンパ流が確認できた部位やリンパ節を示す鼠径部の円形集積部には、それぞれの直上である体表に油性ペンで印をつける。

リピオドールリンパ管造影法

片側または両側の鼠径リンパ節をエコーガイド下または皮膚切開を加えたのち直視下に、27G注射針で穿刺する。リピオドール480注10mL[®]（富士製薬工業株式会社、日本）をきわめてゆっくりと徒手的に注入し、透視下に先進部を確認する。特に小さな患児の場合、顕微鏡も用いた拡大視野下で操作する。0.2mL程度を注入し可及的に胸管本幹が描出されたところで注入を終了する。前述した通り、右左シャントを有する症例では脳梗塞の危険性が報告されているためエコー検査で確認したのち適応外とした（Fig. 1）。

リンパ管静脈吻合術

ICGで描出されたリンパ経路のうち、大伏在静脈近傍で近接した部位を術野とする。20万倍ボスマシンを加えた0.5%リドカイン液を0.1mL程度皮下注射す

Table 1 Patient list

No	Age (month-old)	Sex	Weight at lymph surgery (g)	Diagnosis	Cardiac anomaly	Other Comorbidities	Previous Cardiac/Vascular surgery	Treatment	Post-op course	Outcome
1	1	Male	2.8	CT	Single ventricle		PA banding	LVA	PR	Death due to respiratory distress 3 months post-surgery
2	1	Female	0.86	CT	Vertical vein stenosis		Vein stent			
3	1	Male	2.9	CTA	AVSD	ELBW (518g), hydrocephalus	PA banding	LG	CR	Hospitalization due to hydrocephalus
4	2	Female	2.5	CT				LG	PR	
5	4	Female	3.3	CT				LVA	CR	
6	6	Female	4.6	CTA	TOF	21 trisomy		LVA	CR	
7	11	Female	3.5	CT, PLE	Ebstein, TAPVR	Noonan synd.		LVA	PR	Death due to sepsis 1 year post-surgery
8	12	Male	3.3	CTA		21 trisomy	Starnes	LVA	PR	Death due to respiratory distress 1 year post-surgery
9	13	Male	3.8	CA, PLE	TAPVR		ASD direct closure	LVA	NR	Death due to respiratory distress 2 months post-surgery
10	14	Female	5.2	CT	TOF	21 trisomy	B-T shunt	LVA	NR	Death due to sepsis 8 months post-surgery
11	15	Male	7.3	CTA		Lymphangiomyomatosis	Aortic plasty	LG	PR	
12	30	Male	10	CT	Aortic stenosis			LG	CR	

Case result in death were more likely on patients with refractory chylothorax due to congenital severe heart diseases. We perform surgical treatment only in cases with medical treatments at least 1 month did not cure the chyle leakage. CT: chylothorax, CTA: chylothorax and abdomen, CA: chylothorax, CT: chylothorax, CTA: chylothorax and abdomen, TOF: tetralogy of Fallot, PA: pulmonary artery, ELBWI: extremely low body weight infant. LVA: Lymphatic venous anastomosis, LG: Lymphangiography with Lipiodol. PR: partial response, CR: complete response, NR: no response.

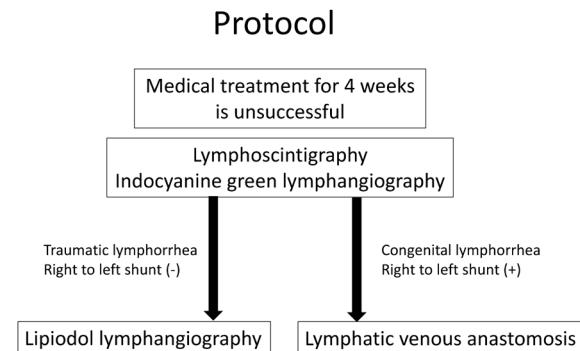


Fig. 1 The Protocol of treatment indications
The indications of lipiodol lymphangiography and lymphatic venous anastomosis.

ることで局所麻酔を行い、1~2 cm の皮膚切開を加える。顕微鏡下に慎重な皮下組織の剥離を行い、集合リンパ管と静脈を露出させる。11-0 または 12-0 ナイロンを用い、2~6 針程度縫合し吻合する。吻合部の開通を確認し、皮膚を 5-0 PDS で縫合閉鎖する。

結 果

経過観察期間は半年から 3 年間であった。3 例で胸水・腹水の軽快を認め、術後早期に自宅退院した（症例 4, 5, 12）。1 例は胸水が完全に止ったものの超低出生体重児（出生 22 週、518 g）であることと基礎疾患（水頭症、脳圧亢進症など）のため入院管理が継続されている（症例 2）。3 例は継続加療を要したが、輸血製剤使用量の減少や呼吸状態の改善を認めた（症例 3, 7, 11）。さらに 3 例は短期的には有効であったものの（輸血製剤減量：症例 1, 6, 8、呼吸状態改善：症例 6, 8），後に呼吸状態の悪化などにより 2 例の無効例（症例 9, 10）と合わせて 5 例が治療経過中に死亡した。死亡例はいずれも先天性難治性乳び胸水で重症先天性心疾患をもち、継続治療が困難であった。死因の内訳は呼吸障害が 60% と最多で、術後 2 か月～1 年（中央値 8 か月）であった（Table 1）。

考 察

乳び胸腹水の発生原因としては以下の 3 つの病態を考えられている。実際にはこれらの病態が複雑に関与しあうために難治化することも少なくない。治療方針は施設と担当医、患者の状態により異なるが、内科治療が奏功することもあるため、保存加療を行った上で治癒しない場合に外科治療を行う²⁾。発症後早期より、絶食（または MCT ミルク、または脂肪制限食）

に加えオクトレオチド、ステロイド、フィブロガミンを段階的に投与する^{3, 4)}。われわれは 1 か月の保存加療で漏出が止まらなければ外科治療を考慮しているが、病態を把握するためにリンパ流の検査は内科治療と並行して行っている。また臨床所見のバリエーションとして、体表浮腫や蛋白漏出性胃腸症、心嚢液貯留などの症状を呈することもある^{5, 6)}。

外傷性リンパ管（胸管）損傷

医原性または外傷性に発症する。胸部外科術後に発症することもあり、診断は比較的早期につくことが多い⁷⁾。保存的に止まることがあるが、長期化することも少くない⁸⁾。リピオドールリンパ管造影法のよい適応である。

先天性乳び胸腹水

先天性のリンパ管未熟性または異形成された流路が関与していると考えられる。リンパ管奇形（リンパ管腫）が腹腔・胸腔内に併発していることも少くない。胎児期より胎児水腫などとともに指摘されていることもあるが、出生後しばらくしてから発症することもある⁹⁾。

静脈うつ滞に伴う胸腹水

特に Fontan 手術や Glenn 手術のように術後に静脈圧が上昇する場合や総肺静脈還流異常症（TAPVR）で肺静脈狭窄を呈する場合などに考慮される¹⁰⁾。循環動態を考えると静脈圧を低下させることが現実的には不可能で、胸腹水の治療にも難渋することがある。そのほか長期間の中心静脈カテーテル留置に伴う石灰化や静脈血栓が原因となることもある。

検査法

形態学的な評価として MRI や CT を行うほか、リンパ流の評価としてリンパ管造影検査（シンチグラフィー、インドシアニングリーン蛍光造影法、造影剤を用いたリンパ管造影）がある。

リンパ管シンチグラフィーは分解能が低く近年使用頻度は減少しつつある。SPECT-CT も深部リンパ管評価目的に成人で使用されることが増えてきたが¹¹⁾、放射能被曝の問題や後述する MRI などに比べると感度が劣るため頻用されてはいない。

ICG は手技が容易であり、即時に観察可能のこと、放射線暴露がないこと、ピンポイントでリンパ流路がわかること、体表への逆流がわかる点がよい。注入後 1 週間程度は皮下注射なく追加観察が可能であり、特

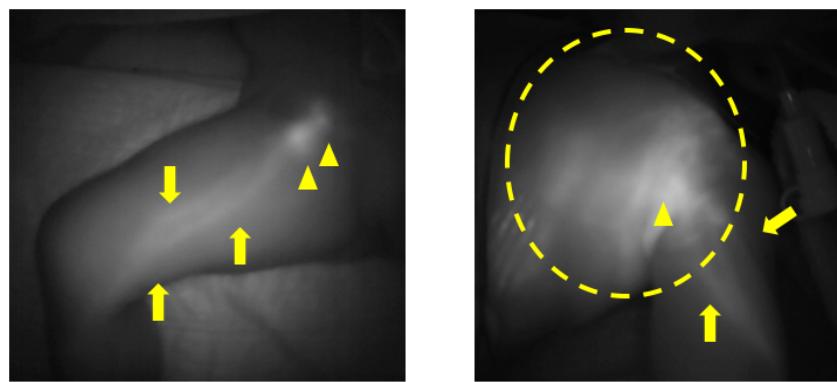


Fig. 2 ICG lymphography findings of congenital chylothorax male, 25 days old. Two minutes after the subcutaneous ICG injection (Case #1)
(a) Right thigh, (b) Left axial. Arrow head: Lymph node, Arrow: Lymph vessels, Interrupted circle: dermal back flow area (mild~moderate). Inguinal lymph nodes were detectable in a couple of minutes after the ICG injection. No additional injections required within one week after the initial injections to assess lymph flow.

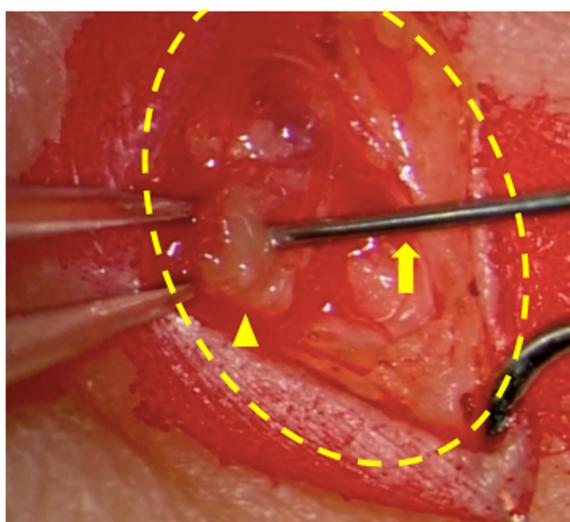


Fig. 3 Open direct lymphangiography (Intraoperative finding) (Case #2)

Lymph node puncture under microscopic dissection, 30 days old, 800g. Arrow head: Lymph node, Arrow: 27G needle, Interrupted circle: skin dissected area.

に小児・新生児での有用性は高い (Fig. 2). ドレーン排液の観察で深部情報を得ることは可能だが、胸腹水の治療にあたっては他の検査法をしばしば併用する。

リンパ管造影検査はリンパ管システム内に直接造影剤などを注入する方法で、直接造影法と呼ばれる。成人の足背リンパ管へ直接穿刺する方法が従来から行われてきた^{12,13)}。小児における同法は特に困難であったが、鼠径リンパ節の直接穿刺で中枢リンパ流が評価可能となった (Fig. 3)。ただし手技に多少の習熟を要するほか、小児例では全身麻酔下陽圧換気で行うた

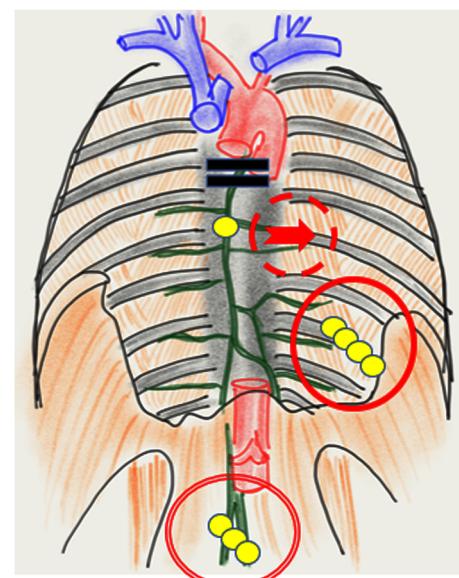


Fig. 4 The concept of etiology of central lymph diseases, and surgical treatments
Single circle: Pooled lymph, Interrupted circle: Leaking, Double circle: Lymph into or out from the central system.

めに胸腔内におけるリンパ管本幹の描出が悪いこともある¹⁴⁾。近年MRIを用いたDynamic MR Lymphangiographyにより動的評価が可能となり、さらに詳細な病態把握が可能となってきた¹⁵⁻¹⁷⁾。先天性乳び胸水として診断されてきたもののなかに、漏出部位やパターンが異なることが報告され、診断的価値が高い¹⁸⁾。

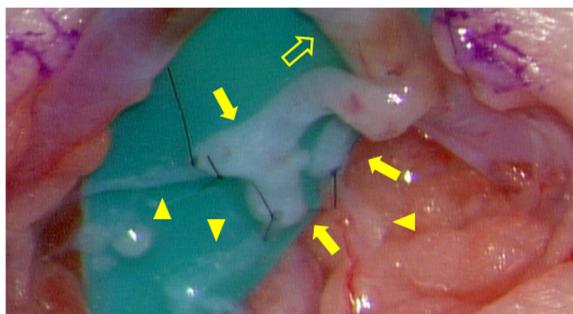


Fig. 5 Lymphatic venous anastomosis, Intraoperative findings (Case #1)

Arrow head: Lymph vessel, Arrow: Branches of the Vein, Empty arrow: Main trunk of the Vein. Vein branches were enlarged with lymph fluid, result in clear expansion. In this case, three lymph vessels were anastomosed to three branches of the vein. Outer diameters were 1.0mm for Main trunk of the vein, 0.6mm, 0.35mm for branch of the vein, and 0.2–0.3mm for Lymphatic vessels.

治療法

下肢からのリンパ流は腹部乳び槽、胸管を通り静脈角へ注ぐ。中枢リンパ流に障害をきたすとリンパ漏が起り胸水、腹水、心囊液、蛋白漏出性胃腸症、乳び尿、浮腫など各症状をきたす。各々の病態に対して外科的治療があるが、しばしば複合療法を要する。

貯留した胸腹水に対する治療として胸腔・腹腔ドレナージや胸腔-腹腔シャント作成術¹⁹⁾、漏出部位へのアプローチとして胸膜瘻着術、胸管結紮術などが行われてきた。リンパ外科としての特徴的な方法にLG²⁰⁾、LVAがある(Fig. 4)。

LGはリンパ管を通じて粘性の高い造影剤が胸腔内に流出する。直接的な塞栓または漏出部位で周囲組織に炎症反応を惹起することで、選択的な瘻着術を起こすと考えられている。合併症としてリンパ浮腫の発症に注意が必要とされる。われわれはリンパ管造影に先行させてICGを併用する方法(ICG-LG)を頻用する²⁰⁾。LG後の下肢浮腫を早期診断するにあたり、追加の造影剤注入を必要とせず小児に適した方法と考えられる。またLGは右左シャントがある場合に脳血流へ造影剤が混入し脳梗塞を起こすことがあり²¹⁾、当院ではシャントを有する患児は対象外としている。肺塞栓を起こす可能性は否定できないが、自験例における術後呼吸状態の悪化は見られなかった。静脈流入後はLGの追加注入をしないように注意している。

LVAはわれわれが好んで用いる、リンパ流再建の主要な方法である。主に成人の二次性リンパ浮腫に対して、本邦を中心発展してきた²²⁾。小切開、浅層

操作で完了し低侵襲であり、成人では局所麻酔で施行できる²³⁾。リンパ液は正常解剖でも静脈へ流れ込むため、比較的自然な再建法である²⁴⁾(Fig. 5)。機序として下肢から中枢リンパ路へ回収される経路を静脈へ逃すほか、体表へ逆流したリンパ液を静脈系へ回収すること、静脈系の止血因子を有した血液が少量リンパ路へ混ざることで漏出部に瘻着を起こすこと、などが考えられる²⁵⁾。

本研究ではCR 33%, PR 50%, NR 17%と有効例は少なくないものの、軽快50%, 入院継続加療8%, 死亡例42%と経過中の死亡例が目立つ傾向にあった。全てLVA症例ではあったが、一方でLGの適応が外傷性を強く疑う状態や右左シャントを有しないなど比較的軽傷症例であったことは特筆すべきである。LVA術後の死亡例はTAPVRやTOFなどを有し静脈圧が高かった。病態として純粋な外傷性リンパ損傷や先天性乳び胸腹水だけでなく、静脈圧の影響が難治化させた可能性が疑われる。また半年以上に及ぶ術後経過中に胸腹水が止まりきらず低栄養が持続・悪化したことが、予後悪化の一因となったと考えられた。本研究では追加治療を行わなかったが、PRで追加治療可能な全身状態では考慮してもよいと考えられた。LGに対して有効性があれば再LG、有効性がない場合や初回からLVAを行った場合には再LVAが可能である。

われわれはこれまでの臨床研究から他のリンパ管疾患もリンパ浮腫と同様に、閉塞(狭窄)とそれに伴う逆流が重要なファクターであると考えている²⁶⁾。例えばリンパ管奇形(いわゆるリンパ管腫)は硬化療法や外科的切除で治療されてきたが、リンパの流れは治療にあたってあまり意識されてこなかった²⁷⁾。一方、ICG造影法を用いてそれぞれに適した吻合形態をとると、難治性とされるmicro cystic typeリンパ管奇形(小さい囊胞が集簇したタイプ:いわゆる海綿状リンパ管腫)でも比較的良好にリンパ流が再建され、治療効果を期待できることが明らかとなってきた^{28,29)}。胸腹水に対してもリンパ流評価をもとにした治療が有効なことがある。特に閉塞などを起点として大腿部皮下までリンパ液の逆流が見られる症例が良い適応と考えている。

胸腹水に対して近年注目される方法として、胸管塞栓術がある^{14, 17, 30, 31)}。胸管を造影したのち直接穿刺し、カテーテルを留置した上で塞栓物質(NBCAやコイルなど)を用いて漏出部または胸管本幹を内部から塞栓する方法である。米国のグループが比較的良好な治療成績を報告しているが、小児や心疾患があるケースでは成功率は成人に比べて低い³²⁾。また胸管

本幹を塞栓した場合に行き場を失ったリンパ液が腸管や大腿部でうっ滞し、難治性の蛋白漏出性胃腸症や下肢浮腫をきたすことがあり、注意を要する。

胸腹水が完治した症例では、退院後数か月のうちに発育・発達は正常曲線内まで成長することが多い。一方で先天性のリンパ管拡張症を伴う場合、臨床には胸水や浮腫が完治していても、のちに悪化し症状が顕在化することがある⁵⁾。したがって当院では内科治療のみで軽快した症例に関してもリンパ専門外来での長期的なフォローアップをルーチン化し、適宜検査や治療を加えている。

リンパ管疾患は大きな変革期を迎えており、新たな技術が台頭し直接リンパ管に操作が加えられるようになったことで、詳細な診断や有効な治療法が開発されるようになってきた。他の脈管がそうであるようにリンパも流れを持った管である。リンパ液は透明で他の脈管に比べて流れは遅く、いわば“おとなしい”ために、これまであまり語られてこなかったのかもしれない。今後はリンパ管疾患も流れに着目し、これを改善することを旨とした外科治療が必要である。Flow Oriented Surgical Strategy（またはFlow Oriented Super-micro Surgery）=FOSS法は低侵襲にリンパ流を評価・再建する治療戦略である²⁵⁾。

われわれは循環器科、心臓血管外科、集中治療科、放射線科、外科、小児科、小児総合診療科、形成外科など多部門がそれぞれの専門性を活かしたチームアプローチで本疾患の治療にあたっている。症例数は未だ少なく、今後さらなる症例と知見の集積を行い、さらに確実な療法を開発する必要がある。

結論

乳び胸腹水はリンパ管疾患である。難治性であり重症例では未だ治療効果は限られているが、病態に立脚した治療方針を立てることで、リンパ流を対象とした低侵襲な治療の可能性が示唆された。過渡期にあるリンパ管治療は今後さらなる発展が期待される。

利益相反

開示すべき利益相反はありません。

引用文献

- 1) Hwang JH, Kim JH, Hwang JJ, et al: Pneumonectomy case in a newborn with congenital pulmonary lymphangiectasia. *J Korean Med Sci* 2014; **29**: 609–613
- 2) Nadolski G, Crucitti P, Mangiameli G, et al: Nontraumatic chylothorax: Diagnostic algorithm and treatment options. *Tech Vasc Interv Radiol* 2016; **19**: 286–290
- 3) Schild HH, Strassburg CP, Welz A, et al: Treatment options in patients with chylothorax. *Dtsch Arztebl Int* 2013; **110**: 819–826
- 4) Lopez-Gutierrez JC, Tovar JA: Chylothorax and chylous ascites: Management and pitfalls. *Semin Pediatr Surg* 2014; **23**: 298–302
- 5) 平野春人, 守義明, 武内健一: Chylopericardiumから十数年後に chylothorax と Chylous ascites をきたした1例. *岩手県立病院医学会雑誌* 2000; **40**: 81–84
- 6) Rosa GM, Campisi C, Bioccardo F, et al: Chylopericardium: A case report demonstrating utility of lymphography combined with 3D computed tomography for corrective surgical treatment using VATS. *Lymphology* 2014; **47**: 40–43
- 7) Pillay TG, Singh B: A review of traumatic chylothorax. *Injury* 2016; **47**: 545–550
- 8) Choh CT, Rychlik IJ, McManus K, et al: Is early surgical management of chylothorax following oesophagectomy beneficial? *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2014; **19**: 117–119
- 9) Scalzetti EM, Heitzman ER, Groskin SA, et al: Developmental lymphatic disorders of the thorax. *Radiographics* 1991; **11**: 1069–1085
- 10) Dori Y, Keller MS, Rychik J, et al: Successful treatment of plastic bronchitis by selective lymphatic embolization in a Fontan patient. *Pediatrics* 2014; **134**: e590–e595
- 11) Yang J, Codreanu I, Zhuang H: Minimal lymphatic leakage in an infant with chylothorax detected by lymphoscintigraphy SPECT/CT. *Pediatrics* 2014; **134**: e606–e610
- 12) Kinmonth JB: Lymphangiography in man: A method of outlining lymphatic trunks at operation. *Clin Sci* 1952; **11**: 13–20
- 13) Kinmonth JB: A review of some technical points. *Lymphology* 1977; **10**: 102–106
- 14) Itkin M, Kucharczuk JC, Kwak A, et al: Nonoperative thoracic duct embolization for traumatic thoracic duct leak: Experience in 109 patients. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2010; **139**: 584–589, discussion, 589–590
- 15) Dori Y, Zviman MM, Itkin M: Dynamic contrast-enhanced MR lymphangiography: Feasibility study in swine. *Radiology* 2014; **273**: 410–416
- 16) Chavhan GB, Amaral JG, Temple M, et al: MR Lymphangiography in children: Technique and potential applications. *Radiographics* 2017; **37**: 1775–1790
- 17) Itkin M: Magnetic resonance lymphangiography and lymphatic embolization in the treatment of pulmonary complication of lymphatic malformation. *Semin Intervent Radiol* 2017; **34**: 294–300
- 18) Itkin MG, McCormack FX, Dori Y: Diagnosis and treatment of lymphatic plastic bronchitis in adults using advanced lymphatic imaging and percutaneous embolization. *Ann Am Thorac Soc* 2016; **13**: 1689–1696
- 19) Nowakowska D, Gaj Z, Grzesiak M, et al: Successful treatment of fetal bilateral primary chylothorax: Report of the two cases. *Ginekol Pol* 2014; **85**: 708–712
- 20) Kato M, Nomura K, Ko Y, et al: The use of indocyanine green lymphography for the treatment of postoperative chylothorax with lipiodol lymphangiography in a 2-year-old child. *J Pediatr Surg Case Rep* 2017; **23**: 46–49

- 21) Kirschen MP, Dori Y, Itkin M, et al: Cerebral lipiodol embolism after lymphatic embolization for plastic bronchitis. *J Pedod* 2016; **176**: 200–203
- 22) 光嶋 熱, 田代絢亮, 加藤 基, ほか: リンパ浮腫に対する手術. *臨床婦人科産科* 2014; **68**: 704–712
- 23) Kato M, Yamamoto T: Simple wire retractor for supermicrosurgical lymphaticovenular anastomosis. *Microsurgery* 2015; **35**: 335–336
- 24) 加藤 基: リンパ浮腫の外科的治療. 東京, ぱーそん書房, 2017, pp 53–62
- 25) 加藤 基: 小児リンパ管疾患とリンパ外科. *医学のあゆみ* 2017; **262**: 1162–1166
- 26) Kato M, Watanabe S, Kato R, et al: Spontaneous regression of lymphangiomas in a single center over 34 years. *PRS Global Open* 2017; **5**: e1501
- 27) Kato M, Watanabe S, Iida T, et al: Peri-orbital lymphangioma treated by lymphatic-venous anastomosis with indocyanine green lymphography analysis. *J Pediatr Surg Case Rep* 2017; **23**: 9–14
- 28) Kato M, Watanabe S, Iida T: Diagnostic imaging for lymphatic disorders: Indocyanine green lymphangiography. *Jpn J Ped Surg* 2016; **48**: 1270–1274
- 29) Kato M, Watanabe S, Iida T, et al: Venous anastomosis procedure for treatment of lymphatic malformation in Klippel-Trenaunay syndrome. *J Pediatr Surg Case Rep* 2017; **20**: 1–3
- 30) Itkin M: Lymphatic intervention is a new frontier of IR. *J Vasc Interv Radiol* 2014; **25**: 1404–1405
- 31) Nadolski GJ, Itkin M: Thoracic duct embolization for nontraumatic chylous effusion: Experience in 34 patients. *Chest* 2013; **143**: 158–163
- 32) Dori Y, Keller MS, Rome JJ, et al: Percutaneous lymphatic embolization of abnormal pulmonary lymphatic flow as treatment of plastic bronchitis in patients with congenital heart disease. *Circulation* 2016; **133**: 1160–1170