# 脾海綿状血管腫の1例

佐世保中央病院外科,長崎大学第1外科\*,長崎大学原研病理\*\*

澤井 照光 國崎 忠臣 中尾 治彦 新宮 浩 石橋 経久 菅村 洋治 鳥越 敏明 正雄\* 富田 関根 一郎\*\*

脾に発生する腫瘍はまれであるが、その中にあっては血管腫の頻度は高く、本邦では現在までに65 例の臨床報告がなされている。今回われわれは、脾海綿状血管腫の1切除例を経験したので、その画像診断上の特徴を中心に、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例は63歳女性で、主訴は上腹部もたれ感、全身倦怠感、体重減少である。生化学的検査では、carcinoma associated antigen 125は、94.2U/ml と高値を示していた。腹部エコーでは、後壁エコーの増強を伴った hypoechoic な腫瘤で、一部 hyperechoic な管状構造が認められた。Computed tomography では、造影効果を伴わない低吸収域であり、血管造影でも類円形の無血管野として描出された。脾臓摘出術を行ったところ、腫瘤は3.6×3.5cm の多胞性嚢胞で、内容液は血性であり、病理組織学的には海綿状血管腫と診断された。

Key words: hemangioma of the spleen, cavernous hemangioma, splenic cyst

### はじめに

脾に発生する腫瘍は、臨床的にはまれであるが、その中にあっては、脾血管腫は頻度が高く、本邦では現在まで65例の報告がみられる。しかしながら、その画像所見については、症例によってさまざまであり、肝血管腫と比較すると術前診断は困難である。今回われわれは、上腹部のもたれ感より発見された本症の1例を経験したので、現在までの報告例を参考に、その画像診断上の特徴と、外科手術の適応とを中心に考察を加えて報告する。

#### 症 例

患者:63歳,女性,

主訴:上腹部のもたれ感,全身倦怠感,体重減少.

家族歴:父親が肺癌のため死亡。

既往歴:特記事項なし、

現病歴:1988年6月中旬,上腹部のもたれ感を主訴として近医を受診し、胃腸透視を受けたが、特に異常所見は指摘されなかった。このため、外来にて経過観察されていたが、その後、次第に全身倦怠感、軽度の体重減少が出現するようになった。さらに1989年に入ると、尿中アミラーゼ値の軽度上昇を指摘されたが、

<1991年11月20日受理>別刷請求先:澤井 照光 〒852 長崎市坂本町 7-1 長崎大学医学部第 1 外

endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) では異常所見は認められず,精査の目的で,同年3月13日,当院へ紹介入院となった.

現症:身長154cm, 体重54kg, 体温36.2℃, 脈拍84/min, 血圧120/74mmHg, 貧血, 黄疸なし. 胸部には理学的に異常所見なし. 腹部は平坦で柔らかく, 圧痛, 腫瘤触知などは認められなかった.

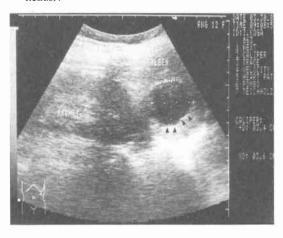
検査成績:血清総蛋白は、5.8g/dl と低値であったが、貧血、血小板減少などはみられなかった。腫瘍マーカーとしては、carcinoma associated antigen 125 (CA125) が94.2U/ml と高値を示したが、carcinoembryonic antigen (CEA) や、 $\alpha$ -fetoprotein (AFP)、carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9) は、いずれも正常であった(Table 1)。

腹部超音波像:脾のほぼ中央部に,類円形で,大きさ $3.6 \times 3.4$ cm の hypoechoic な腫瘤を認め,後壁エコーの増強を伴っていた。内部エコーは不均一で,一部で hyperechoic な管状構造が認められた (**Fig. 1**).

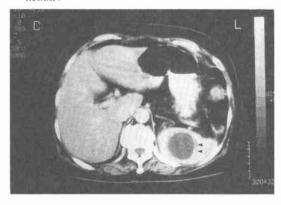
腹部 computed tomography (以下 CT): 単純 CT では、内部構造の均一な low density mass (CT 値+16.4HU)であり、脾実質との境界は比較的明瞭で、その周囲にも、多数の小さい cystic lesions が認められた。造影 CT により、境界はさらに鮮明となったが、増強効果は認められず、また隔壁の存在も指摘できな

RBC	$394\! imes\!10^4\ /\text{mm}^3$	Hgb	13.2 g/dl	Hct	37.8 %
WBC	$4700~/\mathrm{mm^3}$	Plat	$22.1\times10^4$ /mm <sup>3</sup>	ESR	7/20 mm
TP	5.8 g/dl	BUN	10.5 mg/dl	Cr	0.54 mg/dl
Na	$143.1~\mathrm{mEq/l}$	K	3.9 mEq/1	Cl	106 Emq/l
GOT	16 IU	GTP	11 <b>IU</b>	TB	$0.4~\mathrm{mg/dl}$
ALP	5.6 KAU 1	r-GTP	$9\mathrm{mU/ml}$	Amy	122 IU/l
ZnTT	5.8 Ku	ChE	0.99 <b>⊿</b> pH	AFP	1.8  ng/ml
CEA	$0.37 \; \mathrm{ng/ml}$	CA19-9	3.5 U/ml	CA125	$94.2\ U/ml$

**Fig. 1** Ultrasonography of the spleen shows a well-defined hypoechoic mass (solid arrowheads) with tubulous sonodense structures (open arrowheads).



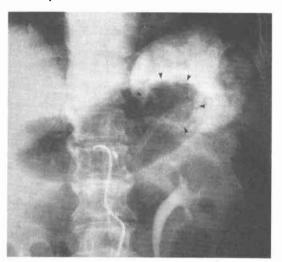
**Fig. 2** Computed tomographic scan after injection of contrast medium demonstrates a low-density, non-enhancing cyst in the spleen (arrowheads).



かった (Fig. 2).

選択的脾動脈造影:明らかな脾動脈の拡張は認められなかったが、脾内動脈枝末梢は左外側に圧排、伸展

**Fig. 3** Angiography reveals an avascular lesion in the spleen (arrowheads).



されていた。実質相においては、新生血管や濃染像は認められず、腫瘍は類円形のやや不規則な avascular area として描出された (Fig. 3).

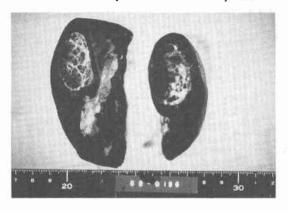
以上により、脾嚢腫と診断し、脾リンパ管腫の疑い で手術を施行した。

手術所見:上腹部正中切開にて開腹したところ腹水なく、肝、胆、膵、腎に著変なし、術中エコーでは、術前に見られたごとく、脾下極よりに境界鮮明なhypoechoic tumorを認めた.型のごとく脾臓摘出術を行い、閉腹した。

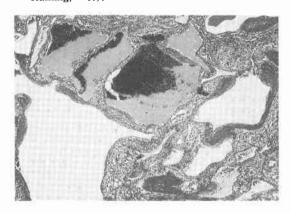
摘出標本:脾実質とは被膜により明瞭に境界された 3.6×3.5cm の多胞性嚢胞を認め、内容液は血性であった(Fig. 4)。術前に CT にて認められていた周囲の小嚢胞は、厚い線維性の被膜により境界された多発性嚢胞の一部であった。

病理組織学的所見:腫瘍は,不均一な線維性の隔壁を有する大小の嚢胞性病変より成り,その内腔は内皮細胞により覆われていた。嚢胞の内容は,赤血球を多

**Fig. 4** Cut surface of the spleen shows a 3.6×3.5 cm multilocular cyst filled with a bloody fluid.



**Fig. 5** Pathological specimen reveals multiple vascular cavities lined by an endothelium (H-E staining, ×40).



数含む漿液性物質で,悪性を疑わせる所見は認められず,脾に発生した海綿状血管腫と診断された(**Fig. 5**)。

### 考察

脾に発生する腫瘍性病変は、臨床的にはまれであるが、その中にあっては、脾血管腫は頻度の高い良性腫瘍の1つであるい。脾血管腫の報告例としては、本邦では1987年に櫻本らかが53例を集計しているが、その後も報告は相次いでおり、自験例を含めると現在まで66例3)~13)となる。一般に、海綿状血管腫の画像診断上の特徴的所見は、腹部超音波検査にてhyperechoic mass, CTでは造影効果を有する low density mass として描出され、選択的血管造影では実質相において cotton-wool-like と表現される斑状の濃染像が認められる。ところが、脾に発生した海綿状血管腫では、上記のごとき典型的な所見とは異なる場合もあり、最近

の報告例を見ても、むしろ超音波所見は hypoechoic mass で、血管造影でも avascular area を示す症例の 方が多い⁴クプ¹のユ゚゚ このため、臨床的には他の脾嚢胞性疾患との鑑別が問題となる。

自験例においても、超音波検査では、後壁エコーの 増強を伴った hypoechoic mass として描出されたが、 その内部エコーは不均一で、一部 hyperechoic な管状 構造が認められた。この管状構造は、組織像における 線維性の隔壁と一致するものと思われ、超音波像は海 綿状血管腫の組織像をよく反映するものと考えられ た。Duddy ら<sup>14)</sup>も脾血管腫の超音波像と組織像とを対 比して報告しているが、無エコー部は漿液性内容液を, 高エコー部はゼラチン様物質を、混合型エコーは線維 性の隔壁を有する部分をそれぞれ表わしていたとして いる。こうした隔壁を有する脾嚢胞性疾患の鑑別診断 としては、cavernous lymphangioma、mucinous cystadenoma<sup>15)</sup>, mucinous cystadenocarcinoma<sup>16)</sup> から 挙げられる。後2者はきわめてまれであるが、一方 lymphangioma との鑑別は、画像診断上はもちろん、 ときに病理組織学的にも鑑別困難な場合があり, 両者 の合併例としての報告さえみられる17)。

CT も, 超音波検査と同様, 腫瘤の全体像, 壁の性状, 隔壁・内容液などの内部構造、腫瘤の原発部位の推定、 他臓器のチェックを行う上で有用である。海綿状血管 腫は, 単純 CT では low density を示し, dynamic CT では、辺縁より徐々に造影されるのが特徴であるが12, その速さは腫瘍内の血管腔の大きさと血流速度により 異なる<sup>9</sup>、 通常の造影 CT では、 撮影のタイミングによ り所見は異なってくるが、さらに腫瘍自体の血流の減 少、嚢胞化が加わると、症例によってさまざまな像を 呈するようになる、脾血管腫の CT 像と組織像とを対 比した報告としては, Danza ら<sup>18)</sup>は, 大部分は造影 CT にて enhance されたが、その内部に造影されない low density を示す病巣が多発していた症例を呈示し、造 影された部分は血流が開存していたが,造影されな かった部分は輸出静脈の血栓により血液鬱滞,凝固を 来していたと述べている.

さて、本邦における脾嚢胞性疾患の報告例を集計すると、脾真性嚢腫の96.3%はリンパ管腫、類上皮嚢腫、血管腫の3者で占められ<sup>2</sup>、血管造影は、これらの鑑別診断に有用であると報告されている。すなわち、海綿状リンパ管腫は、実質相において大小不同の類円形欠損像、Swiss-cheese appearance が特徴的であり<sup>4)19</sup>、類上皮嚢腫は、辺縁に rim stain と表現される濃染像

を伴う avascular tumor である<sup>19)</sup>. 一方,海綿状血管腫は,実質相において,多数の類円形の欠損像とともに cotton-wool-like と表現される斑状の vascular pooling を呈するのが特徴であるが<sup>4)9)12)</sup>. 実際の臨床例について検討すると,自験例のごとく avascular area として描出される血管腫も少なくなく<sup>4)7)10)</sup>, 辺縁のみ濃染される症例も存在する.すなわち血管腫は,血流の状態によって種々の所見を呈しうるため,特徴的所見が得られなかった場合でも脾血管腫を否定することはできない.

以上のように、脾血管腫は、肝血管腫と比較すると、症例によって画像所見が一定しないために術前診断はより困難で、種々の画像診断より総合的に捉えることが必要である。脾血管腫に対するその他の診断法としては、magnetic resonance imaging (MRI) や、 $^{99m}$  Tc-錫コロイドを用いたシンチグラム、あるいは fine needle aspiration biopsy (FNAB) などがある。 MRI では、T2強調画像で hyperintensity な部分は vascular pooling を、low intensity な部分は梗塞巣を示し $^{20}$ 、シンチグラムでは、通常は血管腫に一致した cold defect を示すが、症例によっては hot spot を呈する $^{819}$ . また、FNAB は、良悪性の鑑別や、組織診断に 有用であると報告されている $^{21122}$ )。

ところで山下ら16)は、脾に発生する海綿状血管腫の特徴として、元来充実性であったものが、輸出静脈の閉塞・実質への出血により嚢腫化し、さらに血球成分が吸収されるという自然経過を推測したが、これを裏付けるごとく、溝井ら11)は、1つの腫瘤内に、血管腫、血管腫様病変を含む血性嚢胞、漿液性嚢胞の像が層状に配列した症例を報告している。今回われわれが検討したように、画像所見上、血流に乏しいと考えられる症例や、部分的に血流が途絶した症例も多く報告されていること、また、隔壁の退行性変性によって生じるものと考えられる石灰化についても、少なからぬ報告がみられることは80~10)16)、さらにこのことを支持するものと考えられる.

脾血管腫の治療法として、確実なのは外科的切除であるが、手術の適応にはいまだ議論の余地があろう。 従来より脾血管腫の合併症として、自然破裂、脾機能亢進、悪性化が挙げられておりり、自然破裂を来した際は、当然ながら緊急手術の適応となる。しかしながら、精査にて偶然発見された様な無症状の小さい血管腫に対しては、積極的に切除を行う必要はなく、エコー、CT などによる経過観察で十分であると考えられる。 その他の外科的手術の適応としては、①腫瘤による圧迫症状が強い場合、②腫瘤径が大きく、あるいは被膜下にあって破裂、出血の危険性が高いと判断される場合、③増大傾向を示す場合、④脾機能亢進や、Kasabach-Merritt症候群等の擬固系の異常を伴う場合などが挙げられる。術式は、上記のごとき適応を考えると、多くは脾臓摘出術となるが、摘脾後の免疫能低下を考えると、特に小児では、可能であれば脾機能温存術も考慮すべきであろう。

## 文 献

- Brown BC: Pathology of the spleen. Edited by Nyhus LM. Problems in geneal surgery. Vol 7, No 1, JB Lippincott Company, Philadelphia,j 1990, p48-65
- 2) 櫻本 薫, 唐司則之, 天野穂高ほか:脾リンパ管腫 の1例. 千葉医誌 63:225-229, 1987
- 3) 吉岡伸吉郎, 藤井康史, 松山敏哉ほか:最近経験した Lymphangioma による真性脾嚢胞の 1 例。広島医 41:215-220, 1988
- 4) 岩崎正彦,中山隆雅,檜山義明ほか:原発性脾腫瘍 における画像診断。臨放線 33:673-678.1988
- 5) 井上一彦, 力丸茂穂, 島崎英樹ほか: びまん性脾管腫の1例. 臨放線 33:931-934, 1988
- 6) 島崎英樹,京井優典,大家他喜雄ほか:動脈塞栓療 法を行った脾血管腫自然破裂の1例。診断と治療 10:2559-2560, 1988
- 長谷川貴,森田 穣,斎藤博哉ほか:脾血管腫を合併した blue rubber bleb nevus 症候群の1例。臨放線 33:1143-1146, 1988
- 8) 早坂和正, 斎藤泰博, 菊池雄三ほか:肝脾シンチグラムで"hot spot"を呈した脾血管腫の1例。核医25:1279—1282, 1988
- 9) 森本英雄, 松崎道幸, 浦崎政康ほか: 脾海綿状血管腫の1例。 臨放線 33:1605-1608, 1988
- 10) 町田浩道,中谷雄三,小島幸次朗ほか:石灰化脾動脈瘤を伴った脾血管腫の1例,臨外 44:709-713,1989
- 11) 溝井賢幸, 小林信之, 黒田房邦ほか:嚢胞化する過程が推測された脾血管腫の1例。日消外会誌 22:1911-1914, 1989
- 12) 楠山 明, 吉見 優, 半沢 隆ほか:脾毛細血管腫の1例. 外科診療 31:1716-1720, 1989
- 13) 和田浩一, 和田孝次, 南原 繁ほか:胃粘膜下腫瘍 を疑った脾血管腫の 1 例. Gastroenterol Endosc 32:1155-1160, 1990
- 14) Duddy MJ, Calder CJ: Cystic haemangioma of the spleen: findings on ultrasound and computed tomography. Br J Radiol 62: 180—182, 1989
- 15) 関根秀継,八木雅夫,宮崎逸夫ほか:脾嚢腫の2

1992年 3 月

- 例. 日消外会誌 19:982-992, 1986
- 16) 山下共行, 児玉孝也, 小原孝男ほか: 巨大脾嚢腫 2 例の報告と文献的考察一特に近年の画像診断の進 歩に伴う病像の変化について一。日臨外医会誌 46:1360-1368, 1985
- 17) 北庄司信裕,佐野 統,矢野博正ほか:リンバ管腫 に血管腫を並存した脾腫の1症例。共済医報 31:53-58, 1982
- 18) Danza FM, Sallustio G, Fasanelli L et al: Splenic cavernous hemangioma: CT findings and report of an unusual case. Rays Int J Radiol Sci 13: 77—79, 1988
- 19) 森田 穣,篠原正裕,伊藤和夫ほか:脾海綿状リン

- パ管腫の1例、臨放線 26:701-704, 1981
- 20) Harris RD, Simpson W: Case report: MRI of splenic hemangioma associated with throm-bocytopenia. Gastrointest Radiol 14: 308—310, 1989
- 21) Barbazza R, De Martini A, Mognol M et al: Fine needle aspiration biopsy of a splenic hemangioma. A case report with review of the literature. Hematologica 75: 278-281, 1990
- 22) Edoute Y, Ben-Haim SA, Ben-Arie Y et al: Difficult preoperative diagnosis of a patient with sclerosing splenic hemangioma. Am J Gastroenterol 84:817-819, 1989

#### A Case of Cavernous Hemangioma of the Spleen

Terumitsu Sawai<sup>1)</sup>, Tadaomi Kunizaki, Haruhiko Nakao, Hiroshi Shingu, Tsunehisa Ishibashi, Yoji Sugamura, Toshiaki Torigoe, Masao Tomita<sup>2)</sup> and Ichiro Sekine<sup>3)</sup>

Department of Surgery, Sasebo Chuo Hospital

\*The First Department of Surgery, Nagasaki University School of Medicine

\*\*Department of Pathology, Atomic Disease Institute, Nagasaki University School of Medicine

Although cavernous hemangioma is the most common benign tumor of the spleen, it is a rare disease in clinical practice. Including our own case, 66 cases of splenic hemangioma have been reported in Japan. This paper reports a case of splenic hemangioma together with discussions of its ultrasonographic and radiographic findings. A 63-year-old woman was admitted to our hospital because of vague dyspepsia, general fatigue and weight loss. The blood chemistry profile was normal except for an elevated CA-125 level 94.2 U/ml. Splenic ultrasonography showed a well-defined hypoechoic mass with tubulous sonodense structures associated with posterior enhancement. Computed tomography revealed a low-density mass which was not enhanced after injection of contrast medium. Selective angiography disclosed an avascular lesion. Under the suspicion of a splenic lymphagioma, splenectomy was carried out. The resected specimen showed a  $3.6 \times 3.5$  cm multilocular cyst filled with a bloody fluid. The pathological specimen revealed the typical pattern of cavernous hemangioma.

Reprint requests: Terumitsu Sawai The First Department of Surgery, Nagasaki University School of Medicine

7-4 Sakamoto-machi, Nagasaki, 852 JAPAN