

脾動脈瘤を合併した多発性脾過誤腫の1例

国立東京第二病院外科

木下 貴之 窪地 淳 松井 英男 大石 崇
磯部 陽 奥田 誠 池内 駿之 島 伸吾

症例は57歳の女性。健康診断の腹部超音波検査で脾腫瘍を指摘され、当院に入院となった。入院時現症、既往歴、家族歴、血液検査所見では特に異常を認めず。腹部超音波検査およびCT検査にて、脾内に多数の低エコーまたは低吸収域を認め、造影CTでは均一に造影された。MRIでは、脾内にT1強調で等信号、T2強調でやや高信号、造影剤 meglumine gadopentetate (Gd-DTPA) 投与後、わずかに造影される領域を認めた。腹部血管造影で脾動脈は著明に拡張・屈曲しており一部に動脈瘤を形成し、動脈相において一挙に中心まで染まる腫瘍を多数認めた。手術は脾動脈瘤を含め脾臓摘出術を行った。摘出標本では脾臓実質に、境界明瞭で被膜を伴わない白色の充実性腫瘍を多数認めた。病理組織学的検索で、血管内皮細胞の増殖主体の赤脾髓過誤腫との確診を得た。また、同時に摘出した副脾にも同様の過誤腫を認めた。

Key words: splenic hamartoma, splenic aneurysm, magnetic resonance image

はじめに

脾原発性腫瘍は比較的まれな疾患である。なかでも脾過誤腫の本邦報告例は40数例にすぎないが、近年画像診断の進歩により報告例は増加している^{1)~4)}。

今回われわれは、脾動脈の拡張に脾動脈瘤を合併した多発性の脾過誤腫を経験したので報告する。

症 例

症例：57歳、女性

主訴：なし。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：特に症状はなかったが、平成6年7月検診時の超音波検査で、脾腫瘍を指摘され、精査目的にて当院に入院となった。

入院時現症：身長154cm、体重53kg、貧血、黄疸認めず。表在リンパ節触知せず。腹部は平坦軟で、圧痛なく、肝・脾を触知せず。

入院時検査所見：末梢血液像や血液生化学検査に特別の異常所見はなく、血清学的検査および腫瘍マーカーも正常であった (Table 1)。

腹部超音波検査：脾腫と脾内には大きさ0.5cmから2.5cmの辺縁不明瞭な低エコー領域が多数認めら

Table 1 Laboratory data on admission

RBC	501×10 ⁴	TG	301 mg/dl
Hb	14.6 g/dl	ICG	2.4 %
Ht	42.3 %	ChE	224 IU/l
WBC	7,700	BUN	12.7 mg/dl
Plt	19.5×10 ⁴	CRNN	0.5 mg/dl
TP	7.1 g/dl	Na	143 mEq/l
Alb	4.6 g/dl	K	4.1 mEq/l
T-Bil	0.41 mg/dl	Cl	108 mEq/l
GOT	15 IU/l	CEA	1.5 ng/ml
GPT	17 IU/l	CA19-9	5 U/ml
Al-p	164 IU/l	AFP	4 ng/ml
CRP	0.2 mg/l	IgG	1,066 mg/dl
FBS	115 mg/dl	IgA	252 mg/dl
Amy	62 IU/l	IgM	84 mg/dl
ZTT	4.3 IU/l	IgD	<1.0 mg/dl
T-Chol	204 mg/dl	IgE	49 mg/dl

れた (Fig. 1)。

腹部CT検査：単純CTでは脾腫を認め、脾内に辺縁不明瞭な低吸収領域を認めた (Fig. 2a)。造影CTでは、均一に造影される多数の腫瘍が明らかになり (Fig. 2b)、Dynamic CTでこれらの腫瘍は中心性によく造影された。

腹部MRI検査：脾腫とともに脾門部の脾静脈の拡張・蛇行を認めた。また、T1強調で等信号領域 (Fig. 3a)、T2強調でやや高信号域 (Fig. 3b)、造影剤 meglumine gadopentetate (Gd-DTPA) 投与後、わずかに造影される領域を認めた。

Fig. 1 Ultrasonography of spleen reveals splenomegaly and numerous ill-defined hypoechoic masses 0.5cm to 2.5cm in diameter.

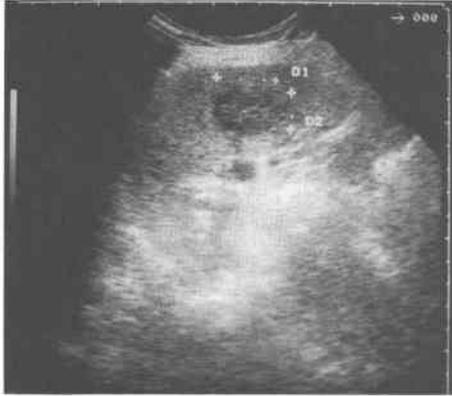
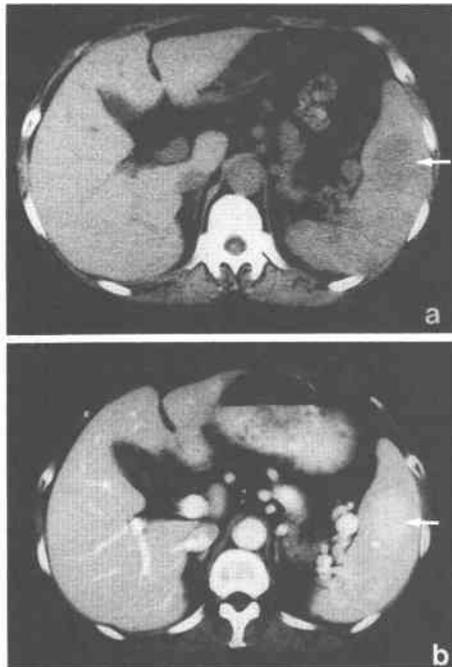


Fig. 2 (a) Plain CT scan reveals slightly low density areas in the spleen. (b) On contrast study, the masses are enhanced, and their margins become clearer.



lumine gadopentetate (Gd-DTPA) 投与後、わずかに造影される領域を脾内に認めた (Fig. 3c).

腹部血管造影：脾動脈は上腸間膜動脈から直接分岐し、著明に拡張し屈曲していた。同時に、脾門部近傍の部位で動脈瘤の形成が観察された。脾臓内の造影所

Fig. 3 Magnetic resonance image (MRI) of abdomen.

(a) On T1-weighted image, the masses are found with iso-intensity areas. (b) On T2-weighted image, they are found with slightly high-intensity areas. (c) on Gd-DTPA study, slightly enhanced regions are shown in the spleen.

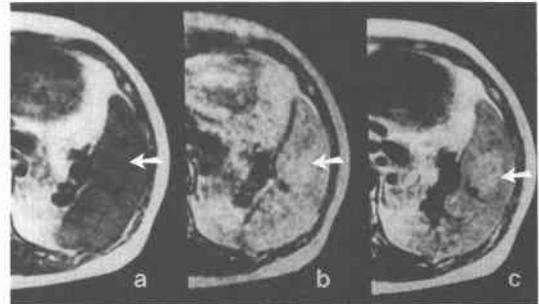


Fig. 4 (a) The arterial phase of splenic angiogram shows tumor vessels, a splenic aneurysm and the splenic artery to be winding and dilated. (b) The venous phase does not show evidences of vascular pooling but does shows tumor steins.



見をみると動脈相で、一挙に中心まで染まる腫瘍が多数認められ (Fig. 4a), 早期の静脈相から腫瘍濃染像がみられたが、これら濃染像は持続せず、いわゆる vascular pooling 像は認められなかった (Fig. 4b).

Ga シンチ：異常集積像なし。

以上の結果、1) 超音波検査で低エコーであること、2) Dynamic CT で腫瘍が中心性に染まること、3) MRI で T2 強調で signal があまり高いこと、4) 腹部血管造影の動脈相で腫瘍が一挙に中心まで染まり、静脈相で腫瘍濃染像が持続しないことより脾過誤腫が最も考えられたが、脾内に腫瘍が多発していることから、悪性のものも否定できず手術を施行した。

手術所見：スワンガンツカテーテルを留置し、手術

Fig. 5 On sectioning, the maximum cut surface presented numerous well-circumscribed, but unencapsulated brownish-white nodular tumors. The largest tumor was 3.5×2×2cm.

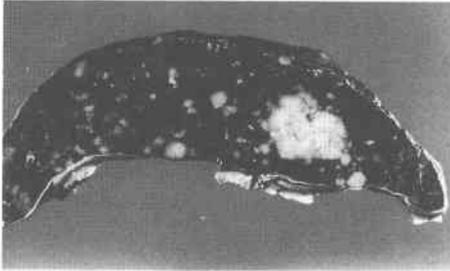
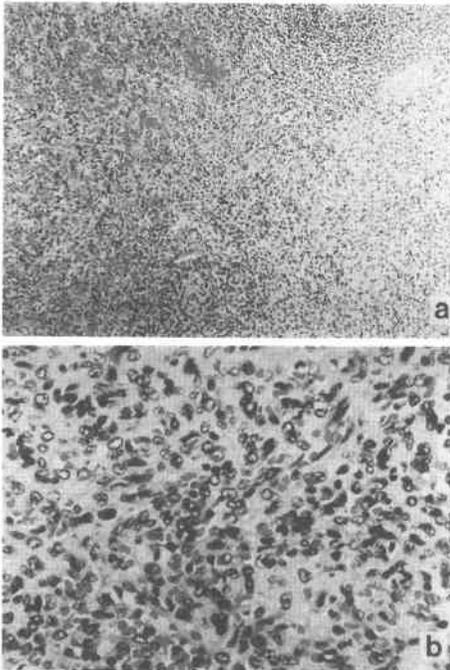


Fig. 6 Histological study (a) H & E ×25. Low power view of the spleen shows no capsule between the normal spleen and the tumor. (b) H & E ×100. Each tumor is characterized by densely-packed monotonous spindle-shaped cells. The red pulp component is markedly congestive and contains numerous hemosiderin-laden cells, whereas the white pulp component is minor and abortive within the nodules.



時の循環動態をモニタリングした。開腹時、脾腫および脾表面全体に散在する白色の結節を認めた。脾動脈

は根部より拡張・蛇行しており脾尾部直上で直径約1.5cmの動脈瘤を形成していた。手術は脾動脈瘤を含め脾臓摘出術を行った。

摘出標本所見：摘出脾臓の重量は320gで大きさは13×13×3.5cmであった。また、脾門部に1cm大の副脾を認めた。断面を肉眼的に観察すると数mmから3.5cm大の白色で内容均一な充実性腫瘤を多数認め、正常脾組織との間に被膜はないが、境界は明瞭であった (Fig. 5)。

病理組織学的所見：HE染色の弱拡大像では、赤脾臓の部を中心に被膜のない比較的境界不明瞭な充実性の細胞増殖が認められた (Fig. 6a)。強拡大像では、増殖した細胞は均一な形態をとり、細胞間の境界は不明瞭であった (Fig. 6b)。さらに、免疫組織学的に血管内皮細胞のマーカーであるUEA1, CD34, 第Ⅷ因子関連抗原にこれらの増殖した細胞はよく染まり、血管内皮細胞の増殖が主体の赤脾髄型の過誤腫と診断された。

また、副脾にも同様の過誤腫を認めた。

考 察

脾過誤腫は1961年Rokitanskyがsplenomaと報告したのが最初で、その後、1978年にSilvermanら⁹⁾が自験例5例を含め91例を集計し報告している。以後1989年までの海外の報告例は、山口ら¹⁾によると約110例である。

本邦では、1973年に久野ら²⁾が、はじめて脾過誤腫を報告して以来、われわれが検索し得た限りでは自験例を含め46例のみであった。その中でも、各種画像診断の進歩とともに近年、報告される症例数は増加しており、本邦報告例46例うち1989年から94年までの間の報告例は16例となっている。

脾過誤腫の臨床症状は、特徴的なものは乏しく、症状のない症例がほとんどで、自験例のように健康診断で偶然に発見されたり、発熱や腹痛の原因精査の際に偶然発見される症例が増えてきている。

画像診断に関して、本邦報告46例のうち所見について記載のあるものを集計し検討すると、超音波検査による腫瘍エコーレベルは、低エコーを示した症例は28例中15例(53.6%)、等エコー5例(17.9%)、高エコー5例(17.9%)で、低エコーを示すものが多かった。CT検査では低吸収域を示すものが28例中22例(78.6%)と最も多く、造影効果を認めたものが22例中17例(73.9%)であった。血管造影では、動脈相で腫瘍血管を認めたものが30例中17例(56.7%)で、静脈

相で腫瘍濃染像が認められたものが30例中22例(73.3%)で、Wexlerら⁹⁾は、脾過誤腫の血管造影ではhypervascular tumorの所見を示すことが多いと報告している。また、岸川ら³⁾のように、腫瘍内に著明な血管増生を伴い、腫瘍血管は不規則に拡張蛇行しA-Vシャントやvascular poolingを認め、悪性腫瘍に類似した所見を示していたと報告しているものもある。

MRIを施行した本邦報告例は5例のみで、5例すべて、T1強調画像で等信号領域を示し、T2強調画像で等信号あるいは高信号領域を示していた。本症例もT1強調画像で等信号領域、T2強調画像でやや高信号領域を示し同様の所見であった。また、Gd-DTPA投与後わずかに造影された。

脾過誤腫の概念については、Albrechtらは正の正常組織の成分の混合異常と述べているが⁷⁾、久野らは脾細網細胞の腫瘍性増生が病変の主体であり、自律性をもった腫瘍に相当する過誤芽腫であると提唱している²⁾。

肉眼的所見として、脾過誤腫は境界明瞭で被膜を欠く類円形の結節を示し、正常脾実質に囲まれて存在する単発ないし数個の予らかい暗赤色の腫瘤を形成するのが一般的であるが、久野ら²⁾によれば繊維化、石灰化を伴った例、嚢胞状を呈した例などもあり、自験例のように白色調を呈する症例も少数ではあるが脾過誤腫の多彩な所見のひとつであると考えられた。また、病変部と正常部の色調の違いは、内皮細胞の増殖と洞内のうっ血の程度の差によるものと考えられた。

自験例では、白色の境界明瞭で被膜を欠く腫瘤が脾臓全体に多発し、さらに副脾にまで認め、同様な形態をとった報告例は検索しえた限りではなく、腫瘍生物学的に興味深い症例であった。

一方、病理組織学的には、髄洞様組織が多くの成分を占める赤脾髓型、リンパ様組織が多くの成分を占める白脾髓型、両者の混合型、結合組織が大部分を占める線維型などに分類されている。本邦報告例のうち、組織型が明らかな36例について検討してみたところ、赤脾髓型が24例(66.6%)と多数を占め、線維型の3例がこれに次ぎ、白脾髓型は1例であった。また、36例の中には混合型も4例あり、細網細胞の腫瘍性増殖や過誤腫様組織を伴ったリンパ管腫などが脾過誤腫として報告されている。前に述べたように脾過誤腫の画像所見は多様であり、特に腫瘍内のvascularityの差は、腫瘍構成成分である赤脾髓と白脾髓の比率の差によっておこった可能性があると考えられる。

治療に関して、脾過誤腫は基本的には良性腫瘍であるが、Iozzoら⁸⁾は脾機能亢進症状をとまなうものは脾摘出術により症状の改善がみられており手術を行うべきだとしている。また、本邦での報告はないが、欧米において2例の自然破裂症例もあるために手術適応があるという報告もある⁹⁾¹⁰⁾。しかし、大部分の症例は、無症状でも悪性腫瘍との鑑別が困難で診断目的で手術が施行されている。このような意味からも今後画像診断が発達し、画像診断上腫瘍の特徴的な所見が明確となり、過誤腫と確定診断ができるようになれば、手術を回避し経過をみることも可能になると考えられる。本症例は、前記したように脾過誤腫が脾内に多発し、このような報告はなく、他の悪性腫瘍も否定し得なかったことから手術適応とした。

また、本症例では術前に施行した血管造影検査で脾動脈への血流が著明に増加していることが確認されていたため、スワンガンツカテーテルを留置して手術中のCardiac out put (C.O.)を測定している。脾動脈の血流遮断時に、腫大していた脾臓は著明に縮小し、C.O.の測定値も5,90l/min.から3.45l/min.に変化し、脾動脈への血流が術前診断通りに著明に増加していたことが確認された。脾動静脈の拡張を伴った症例は鈴木ら⁴⁾が報告しているが、動脈瘤を形成するまでには至っていない。自験例では、腫瘍による著明な血管増生に伴い脾臓への血流の増加をきたし、動脈硬化を伴った脾動脈に2次的に動脈瘤を形成した可能性がある。この場合、放置していたら動脈瘤破裂の危険性もあり、脾過誤腫と診断がついていたとしても手術適応はあったものと考えられる。

文 献

- 1) Yamaguchi K, Maeda S, Kitamura K: Splenic hamartoma: Report of a case and review of literature. *Jpn J Surg* 19: 381-386, 1989
- 2) 久野修資, 住友昭信, 田中健蔵: 脾の過誤芽腫—1手術例の報告とその組織発生に関する考察. *癌の臨* 19: 1193-1198, 1973
- 3) Kishikawa T, Numaguchi Y, Watanabe K et al: Angiographic diagnosis of benign and malignant splenic tumors. *AJR Am J Roentgenol* 130: 339-344, 1978
- 4) 鈴木芳明, 木村幸三郎, 青木達哉ほか: 肝血管腫・卵巣皮様嚢胞を併存した脾過誤腫の1例. *日臨外医会誌* 53: 2510-2515, 1992
- 5) Silverman ML, LiVolsi VA: Splenic hamartoma. *Am J Clin Pathol* 70: 224-229, 1978
- 6) Wexler L, Abrams HL: Hamartoma of the

- spleen, angiographic observations. *AJR Am J Roentgenol* 13 : 1150—1155, 1964
- 7) Albrecht KMP : Uber hamartoma. *Verh Dtsch Ges Pathol* 7 : 153—157, 1904
- 8) Iozzo RV, Haas JE, Chard RL : Symptomatic splenic hamartoma : A report of two cases and review of the literature. *Pediatrics* 66 : 261—265, 1980
- 9) Morgenstern L, McCafferty L, Rosenberg J et al : Hamartomas of the spleen. *Arch Surg* 119 : 1291—1293, 1984
- 10) Coe JI, Drashek SC : Hamartoma of the spleen ; a report of four cases. *Am J Pathol* 28 : 633—667, 1952

A Case of Multiple Splenic Hamartomas with Splenic Aneurysm

Takayuki Kinoshita, Kiyoshi Kubochi, Hideo Matsui, Takashi Ohishi,
Yoh Isobe, Makoto Okuda, Syunji Ikeuchi and Shingo Shima
Department of Surgery, The Second Tokyo National Hospital

A 57-year-old woman was found to have splenic tumors by ultrasonography at a physical checkup, and was admitted to our hospital. She had no subjective symptoms and there were no particular problems in her medical history. Laboratory data on admission were normal. Abdominal ultrasonography and computed tomography showed numerous hypoechoic and low density solid masses in the spleen. In contrast and dynamic studies, they were enhanced. The magnetic resonance image showed isointensity masses on T1-weighted images and slightly high intensity masses on T2-weighted images. In a Gd-DTPA study, they were found in slightly high intensity areas. Splenic angiograms showed numerous hypervascular tumors and a splenic aneurysm. The splenic artery was winding and dilated. The splenic aneurysm was resected in addition to splenectomy. The cut surface of the resected spleen showed numerous well-circumscribed, but unencapsulated white tumors. The histological diagnosis of the splenic tumors was hamartoma consisting of red pulp components. The same histological findings were also detected in accessory spleen.

Reprint requests: Takayuki Kinoshita Department of Surgery, The Second Tokyo National Hospital
2-5-1 Higashigaoka, Meguro-ku, Tokyo, 152 JAPAN
