

脾過誤腫の 1 例

トヨタ記念病院外科, 同 消化器内科*, 同 病理**

安藤 拓也 榊原 堅式 辻 秀樹 西脇 巨記
水野幸太郎 安藤 重満 三宅 忍幸* 田代 和弘**

まれな疾患である脾過誤腫の 1 例を経験したので報告する。

症例は47歳の男性。超音波で脾臓に2個の高エコー腫瘤を指摘された。2個の腫瘤はCTで造影効果を認める低吸収域像, MRIではT1強調像で等信号, T2強調像でやや高信号, 血管造影で腫瘍濃染を呈した。フチン酸シンチにて集積亢進を認め脾過誤腫と診断した。患者の希望により, 脾臓摘出術を施行した。径約5cmの暗赤色の腫瘤を2個認め, 病理組織検査ではいずれも赤髄型の脾過誤腫と診断された。脾過誤腫はまれな疾患であり本邦では自験例を含めて47例の報告がみられるにすぎない。構成する組織成分の多寡により多様な画像所見を呈するといわれているが, 組織型別に画像所見を検討すると, 赤髄型および混合型はT2強調像で等または高信号, 血管造影でhypervascularであることが多く, 線維型はT2強調像で低信号, 血管造影でhypovascularであることが多い。

はじめに

脾過誤腫はまれな疾患であり無症状に経過することが多いが, 画像診断の進歩により近年報告例が増加してきている。一般に術前診断は困難とされているが, 我々は術前に脾過誤腫と診断し脾臓摘出術を行った1例を経験したので, 文献的な考察を加えて報告する。

症 例

患者: 47歳, 男性

主訴: 左季肋部痛

既往歴: 16歳時, 急性肝炎

家族歴: 特記すべき事なし。

現病歴: 平成11年9月6日肛門周囲膿瘍にて近医入院。入院時検査にて肝機能異常を認め, 腹部超音波検査にて脾臓に2個の腫瘤を指摘された。9月14日精査目的に当院紹介受診となった。数年前より約2か月に1回の割合で, 数秒間の左季肋部痛がみられた。

入院時現症: 身長170cm, 体重65kg。血圧120/81mmHg, 脈拍66/分整。腹部平坦軟で圧痛なく, 肝脾を触知せず。貧血, 黄疸はなく, 表在リンパ節を触知せず。

入院時血液生化学的所見: AST: 29IU/l, ALT: 38IU/l, γ -GTP: 99IU/l, T. Bil: 1.2mg/dlと軽度の肝機能異常を認めた以外は, 腫瘍マーカー(CEA, CA

19-9)を含めて正常範囲内であった。

腹部超音波検査: 脾臓に内部が均一の境界明瞭な高エコーの腫瘤を2個認めた。

腹部CT検査: 単純CTでは脾臓の上極に径約5cm, 下極に径約5.5cmの境界明瞭, 脾実質よりやや低吸収域の円形の腫瘤を認めた。造影CTでは造影早期相(30秒後)で上極腫瘤は内部が不均一に濃染され, 下極腫瘤は辺縁部が強く濃染された。後期相(90秒後)になるとどちらの腫瘤とも脾臓とほぼ同程度に均一に造影された。

腹部MRI: 腫瘤はいずれもT1強調像で健常部と等信号, T2強調像ではやや高信号を呈した。

腹部血管造影: 脾上極と下極にhypervascularな腫瘤像を認めた。静脈相では両腫瘤とも濃染された(Fig. 1)。

以上の検査より, 脾臓の過誤腫が強く疑われたが, 悪性リンパ腫などの他疾患も否定できずRI検査を施行した。

Gaシンチ: Planar像では脾臓の下極にわずかに集積を認め, SPECTでは脾臓の下極に集積を認めた。

フチン酸シンチ(Tc-99mPhytate): Planar像では脾臓上極の内側に肝以上の集積を示す腫瘤を認め下極の腫瘤にも集積を認めた。SPECTでも腫瘤への集積亢進を認めた(Fig. 2)。

以上の検査結果より脾過誤腫と診断された。以後, 経過観察していたが左季肋部痛の頻度が増加したこと

<2001年3月28日受理> 別刷請求先: 安藤 拓也
〒517 0703 三重県志摩郡志摩町和具1066 前島病院
外科

Fig. 1 Angiography revealed two hypervascular masses in the upper pole and the lower pole of the spleen.



より、患者より手術希望があった。平成12年1月24日開腹による脾臓摘出術を施行した。

摘出標本：脾臓の重量は約310g。上極に径5×4×4cm，下極に径5.5×4×4cmの充実性腫瘤を認めた。断面では両腫瘤ともに正常脾よりやや暗赤色であり，内部は均一で周囲との境界は明瞭であった（Fig. 3）。

病理組織標本：腫瘤は脾実質内の上極，下極に2個存在し，ともに明らかな被膜形成はみられなかった。上極に存在した腫瘤は白脾髄の形成は乏しく赤脾髄の過形成がみられ，周囲との境界は明瞭であった。また下極に存在した腫瘤も基本的には上極の腫瘤同様に白脾髄の形成は乏しく赤脾髄の過形成が主体であるが脾洞の拡張が著明であり，拡張した脾洞内には多くの赤血球が貯留していた。いずれの腫瘤においても細胞の核異型は認めず，赤脾髄型の脾過誤腫と診断した（Fig. 4）。術後左季肋部痛は消失し，術後12日目に軽快退院となった。

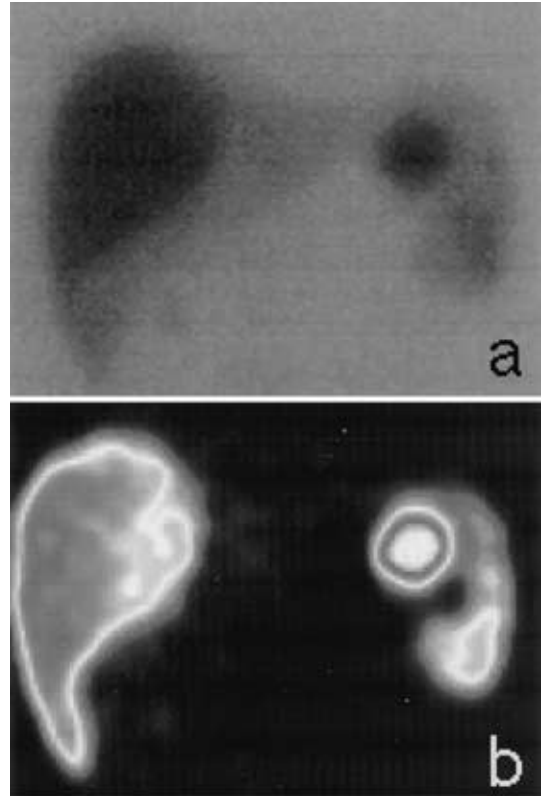
考 察

脾原発の過誤腫はまれな疾患であり，Berge¹⁾は8,114例の剖検例中10例(0.12%)に脾過誤腫を認めている。脾過誤腫に特有な症状はなく，他疾患の精査の際に偶然に発見されることがほとんどである。有症状例では腹痛，腫瘤による圧迫症状などが多く，まれに貧血や血小板減少など脾機能亢進による症状²⁾を呈することもある。また，国外では自然破裂の報告³⁾もみられる。本邦における過去の文献を検索したところ，自験例を含めて47例が報告されており，画像診断の進歩により1990年代以降報告例が増加してきている。年齢は生後

Fig. 2 Tc-99m Phytate.

Tc-99m Phytate scintigraphy showed the intense uptake in the both masses. Especially, the mass in the upper pole showed “doughnut” pattern with higher uptake in the peripheral portion of the mass.

a : Planar imaging, b : SPECT.



5か月から80歳まで平均47.3歳で，男女比は19：28であった。多発例は5例(10.9%)にみられた。Berge¹⁾は増殖する主な組織成分により脾過誤腫を1)赤脾髄型 pulposal type, 2)濾胞型 follicular type, 3)混合型 mixed type, 4)線維型 fibrous type に分類した。正常脾の構成成分のうち赤脾髄の増生したものを赤脾髄型，リンパ濾胞の増生したものを濾胞型，両者の混在したものを混合型としている。線維型はこれらの腫瘍内に出血性組織破壊をきたして修復が線維形成性に進んだ結果である⁵⁾といわれている。

脾過誤腫は多彩な画像所見を呈するといわれているが，それは主に腫瘤内の vascularity(主に脾洞組織の有無)や線維成分の多寡に依存すると考えられる。我々は Berge の病理組織型を考慮して画像所見を比較検

討した。自験例を含めた47例を病理組織型にて分類すると赤脾髄型26例(55.3%)、混合型8例(17.0%)、線維型9例(19.1%)、濾胞型1例(0.21%)、分類不能3例であった。これらのうち赤脾髄型、混合型、線維型の記載の明らかなものについて画像所見を示した(Table 1)。超音波検査では、赤脾髄型では17例のうち12例が低~等エコー、5例が高エコーを呈し、混合型では6例とも低~等エコーを呈した。線維型では6例のうち3例が低エコー、3例が高エコーを呈した。全体として低~等エコー像を呈することが多く組織型によるエコー所見の差はみられなかった。CT検査では、いずれの組織型においても低吸収域を呈したものが多く高吸収域を呈したものはなく、組織型による差はみられなかった。MRI検査のT1強調像では、赤脾髄型で15

Fig. 3 A cut-surface of the resected specimen. There were two well demarcated dark-red masses (arrows) in the upper pole and the lower pole of spleen.

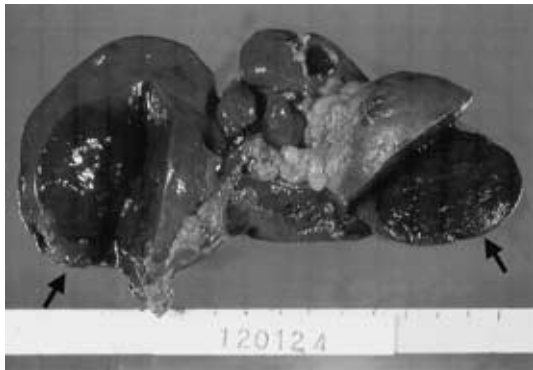


Fig. 4 Histological findings showed hyperplasia of red pulp tissue in the both tumors. And none of white pulp tissue were seen in the tumors. In the tumor of the lower pole, the dilations of sinus in red pulp tissue were remarkable. In each figure, Left half is the normal splenic tissue, and right half is the tumor tissue (H.E. staining. x40)
A : the tumor of the upper pole, B : the tumor of the lower pole.

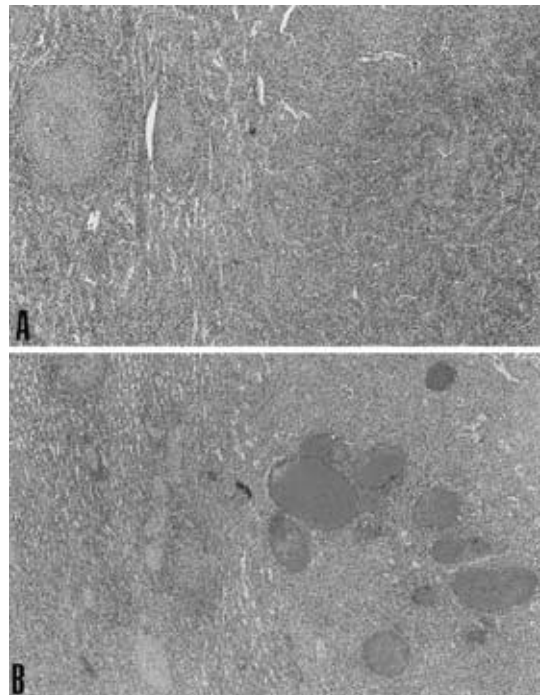


Table 1 characteristics of image findings in the pulposal type, the mixed type, and the fibrous type

	US		CT		MRI		T1	T2	Angiography	
pulposal type (26 cases)	low echo	8 (47.1%)	low density	17 (68.0%)	low intensity	2 (13.3%)	3 (20.0%)	hypervascular	18 (94.7%)	
	iso echo	4 (23.5%)	iso density	8 (32.0%)	iso intensity	12 (80.0%)	6 (40.0%)	hypovascular	1 (5.3%)	
	high echo	5 (29.4%)	high density	0	high intensity	1 (6.7%)	6 (40.0%)			
		17		25		15	15		19	
mixed type (8 cases)	low echo	5 (83.3%)	low density	4 (57.1%)	low intensity	0	0	hypervascular	5 (83.3%)	
	iso echo	1 (16.7%)	iso density	3 (42.9%)	iso intensity	2 (100%)	0	hypovascular	1 (16.7%)	
	high echo	0	high density	0	high intensity	0	2 (100%)			
		6		7		2	2		6	
fibrous type (9 cases)	low echo	3 (50.0%)	low density	5 (71.4%)	low intensity	2 (40.0%)	4 (80.0%)	hypervascular	0	
	iso echo	0	iso density	2 (28.6%)	iso intensity	3 (60.0%)	1 (20.0%)	hypovascular	7 (100%)	
	high echo	3 (50.0%)	high density	0	high intensity	0	0			
		6		7		5	5		7	

例のうち2例が低信号, 12例が等信号を呈し, 混合型で2例のうち2例とも等信号を呈した. 線維型では5例のうち2例が低信号, 3例が高信号を呈した. T2強調像では赤脾髄型で15例のうち12例が等~高信号を呈し, 混合型で2例のうち2例とも高信号を呈したのに対して線維型では5例のうち4例で低信号を呈した. 腫瘍はT1強調像では組織型に関わらず等信号を呈することが多いが, T2強調像では赤脾髄型および混合型では脾洞組織の増生により多血性であることより等または高信号を呈する例が多く, 線維型では繊維成分が多く乏血性であり低信号を呈することが多い. ただ, 腫瘍内に嚢胞形成や出血などの二次的变化を伴う場合には信号が変化することを考慮するべきである. 血管造影検査では, 腫瘍は赤脾髄型19例のうち18例が, 混合型6例のうち5例がhypervascularであり, 線維型では7例ともhypovascularであった. これらの検査によって腫瘍の構成成分のうち, vascularityや線維成分の多寡を評価して組織型をある程度分類することが可能であると思われる.

脾機能を有する腫瘍が否かをみるにはシンチグラムが有用である. Tc-99m 標識コロイドシンチ(99mTcスズコロイド^{7,8)}, Tc-99m フチン酸⁹⁾などは脾臓の細網内皮細胞によって取り込まれることより, コロイドの集積を認める場合には脾機能を有する組織を含んでいることを意味し, 赤脾髄型または混合型の脾過誤腫の診断となりえる^{8,9)}. また, Planar像よりSPECTで集積が明らかな場合が多い. しかし集積を示さない脾過誤腫もありシンチ単独では診断できず, 他の検査と併せて総合的に判断するべきである. 本症例も諸検査にて脾過誤腫を疑いフチン酸シンチにて診断を確定した. 脾血管腫も本症例のように単純CTで低吸収域を示し造影CTで造影効果を認めるが, 血管撮影にてcotton like patternを呈することと脾機能を有しないためシンチグラムにて集積を認めないことより鑑別可能である. 病理組織上も類似した所見を呈する場合があるが血管腫では腫瘍内に白脾髄を認める点が異なっている.

本症例の2個の腫瘍はいずれも赤脾髄型の過誤腫であったが, 上極の腫瘍では脾洞組織は認めるが拡張はなく赤血球も貯留していないが, 下極腫瘍では拡張した脾洞組織の増生が著明で赤血球も多く貯留していた. 画像所見もわずかに異なっており, 造影CTでは

張した脾洞組織への造影の流入のしかたの違いか, 同じ赤脾髄型であっても脾洞組織の拡張の多寡により腫瘍の染まり方がわずかに異なると思われる. またフチン酸シンチではコロイドは脾索に存在する細網内皮細胞の機能や分布が異なるのか上極の腫瘍でより強い集積が認められた. このように同じ組織型であっても画像所見は異なることが多く, さらに腫瘍内の線維化の程度, 出血や壊死などの二次性変化が加わり術前診断を困難にしている.

これまでは術前診断がつかず手術を施行し病理学的に過誤腫と診断が確定する場合がほとんどであったが, 今後は画像診断の進歩により自験例のように画像所見にて診断がつく症例が増加すると予想され手術適応が問題となるであろう. 自然破裂の報告もあり, 有症状例では手術の適応はあるものと思われ, 術前診断がつけば脾機能温存のため脾部分切除術も考慮するべきである.

文 献

- 1) Berge T : Splenoma, Acta Pathol Microbiol Scand 63 : 333-339, 1965
- 2) 乳原善文, 守永真一, 山口 潜ほか : プレドニソロンの投与, さらに腫瘍摘出により血小板の正常化を見た血小板減少を伴った脾過誤腫の1例. 臨血 29 : 1083-1087, 1988
- 3) Morgenstein L, McCafferty L, Rosenberg J et al : Hamartoma of the spleen. Arch Surg 119 : 1291-1293, 1984
- 4) Ferguson ER, Sardi A, Beckman EN et al : Spontaneous rupture of splenic hamartoma. J La State Med Soc 145 : 48-52, 1993
- 5) 熊谷 宏, 松井美保子, 吉岡治彦 : 脾過誤腫の成因と増大に関する病理学的研究. 弘前医 45 : 137-149, 1993
- 6) 山田幸生, 石川裕章, 安田大助ほか : 脾過誤腫の1例. 日消病会誌 87 : 2685-2689, 1990
- 7) 栗屋美佐子, 長岡 栄, 本間 穰ほか : 99Tc スズコロイドシンチが診断に有用であった脾過誤腫の1例. 臨放線 42 : 1075-1078, 1997
- 8) Okada J, Yoshikawa K, Uno K et al : Increased activity on radiocolloid scintigraphy in splenic hamartoma. Clin Nucl Med 15 : 112-115, 1990
- 9) Shimuzu K, Suga K, Matsunaga N et al : Splenic hamartoma presenting as a " Hot Spot " on Tc-99m phytate SPECT imaging. Clin Nucl Med 23 : 370-373, 1998

A Case of Splenic Hamartoma

Takuya Ando, Kenichi Sakakibara, Hideki Tsuzi, Naoki Nishiwaki, Kotaro Mizuno,
Shigemitsu Ando, Nobuyuki Miyake* and Kazuhiro Tashiro**

Department of Surgery, Toyota Memorial Hospital

Department of Gastroenterological Internal Medicine*

Department of Pathology**

In a rare case of splenic hamartoma, a 47-year-old man was hospitalized due to 2 high echoic masses in the spleen detected by Ultrasonography. Masses were low-density with enhancement in computed tomography (CT) and iso-intensive in T1-weighted magnetic resonance (MR) imaging, and slightly high-intensive in T2-weighted imaging. Angiography showed them to be hypervascular. Tc-99m phytate scintigraphy showed intense uptakes in masses, diagnosed as splenic hamartomas, for which we conducted a splenectomy at the request of the patient. Two dark-red masses about 5 cm in size were seen in the resected specimen, and histologically diagnosed as pulposal types of the splenic hamartomas. Image findings for splenic hamartoma are reported to be non-specific, so we reviewed the literature and discussed image findings based on differences in historical type. Most pulposal and mixed types show iso- or high-intensity masses in T2-weighted MR imaging and hypervascular masses in angiography. Most fibrous types show low-intensity masses in T2-weighted MR imaging and hypovascular in angiography.

Key words : splenic hamartoma, pulposal type, Tc-99m Phytate scintigraphy

[Jpn J Gastroenterol Surg 34 : 619 - 623, 2001]

Reprint requests : Takuya Ando Department of Surgery, Sakishima Hospital
1066 Wagu Shima-cho, Shima-gun, Mie, 517 0703 JAPAN
