

脾破裂を契機に発見された成人 T 細胞性白血病の 1 例

新宮市立医療センター，三重大学第 2 外科*

湊 栄治 藤野 一平 杉平 宣仁
松本 収生 嶋 廣一 三木 誓雄*

症例は 72 歳の男性．近医受診中に，ショック状態となり当院に救急搬送された．来院時血圧 84/60mmHg，脈拍 96/min，著明な腹部膨満を認めた．血液検査データにて高度貧血，白血球数および異常リンパ球比率の上昇を認めた．末梢血液像では分葉化傾向をもつ核の異常 T 細胞の増殖を認め，血清抗 HTLV-1 抗体も高値を示したため成人 T 細胞性白血病 (ATL) と診断した．腹部造影 CT 検査にて，脾臓の横隔膜面に造影剤の pooling 像が認められた．脾破裂による腹腔内出血の診断で緊急手術を施行したところ，脾臓の横隔膜面に破裂を認めたため脾臓摘出術を施行した．摘出した脾臓の病理組織学的所見では，皮髄構造は破壊，消失しており，ATL の脾臓への浸潤が認められた．脾破裂を来すような外傷の既往もなく ATL の脾臓への浸潤に伴う脾破裂と考えられた．白血病により脾破裂を来すことはまれであり，若干の文献的考察を加え報告する．

はじめに

臨床において特発性脾破裂を経験することはまれであるが，血液悪性疾患に伴う脾破裂は重大な合併症の 1 つである．今回我々は，成人 T 細胞性白血病による脾破裂の 1 救命例を経験したので報告する．

症 例

症例：72 歳，男性

主訴：低血圧性ショック，腹部膨満

家族歴：特記事項なし．

既往歴：平成 12 年ごろより糖尿病

現病歴：平成 14 年 11 月 29 日，全身倦怠感にて近医受診中に突然ショック症状をきたし，当院に救急搬送された．来院時，血圧 84/60mmHg，脈拍 96/min．顔面は蒼白で苦悶様であり，著明な腹部膨満を認めた．腹腔内出血による出血性ショックの疑いで当科に緊急入院となった．

入院時血液検査所見：異常リンパ球を優位とした白血球数の著明な上昇がみられ，貧血，血小板減少を認めた．血液生化学検査では LDH，ALP

Table 1 Laboratory data on admission

| Peripheral blood | | Biochemistry | |
|-------------------------------|----------------------------|--------------|-------------|
| RBC | 289 × 10 ⁴ / μl | T-Bil | 0.47 mg/dl |
| Hb | 8.6 g/dl | GOT | 59 IU/L |
| Ht | 24.3 % | GPT | 54 IU/L |
| Plate | 5.7 × 10 ⁴ / μl | LDH | 482 IU/L |
| WBC | 37,600 / μl | ALP | 557 IU/L |
| Stab | 2.4 % | CPK | 12 IU/L |
| Seg | 32 % | AMY | 34 IU/L |
| Lympho | 10 % | GLU | 410 mg/dl |
| Mono | 6 % | BUN | 20.4 mg/dl |
| Eosi | 0 % | CRE | 1.26 mg/dl |
| Baso | 0.6 % | Na | 134.6 mEq/l |
| Aty-Lymp | 49 % | K | 4.5 mEq/l |
| Anti HTLV-1 antibody positive | | Cl | 102.7 mEq/l |
| | | Ca | 8.7 mg/dl |

の上昇および高血糖が見られ，抗 HTLV-1 抗体は高値を示した (Table 1)．末梢血液像では，クローバ状の切れ込みを有する分葉化傾向をもつ核の異常 T 細胞の増殖を認めたため成人 T 細胞性白血病と診断した (Fig. 1)．

腹部造影 CT 検査所見：脾臓の横隔膜面に出血した血液による造影剤の pooling 像を認め，多量の血性腹水の貯留が認められた．腹腔内リンパ節

< 2003 年 5 月 27 日受理 > 別刷請求先：湊 栄治
〒647 0072 新宮市蜂伏 18 7 新宮市立医療センター-外科

Fig. 1 Peripheral blood smear showing ATL cells.

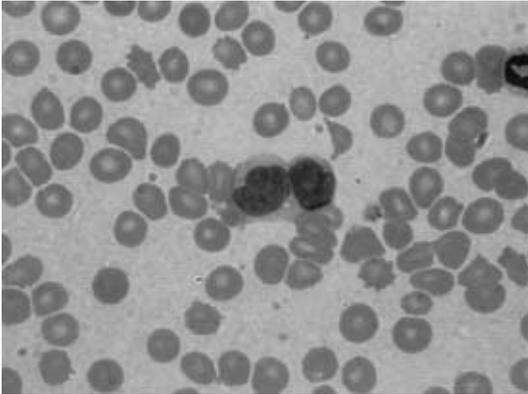


Fig. 2 Enhanced CT scan revealed massive hemoperitoneum and rupture of the spleen.



Fig. 3 Cut surface of the excised spleen showing rupture in the diaphragmatic surface and subcapsular infarction.

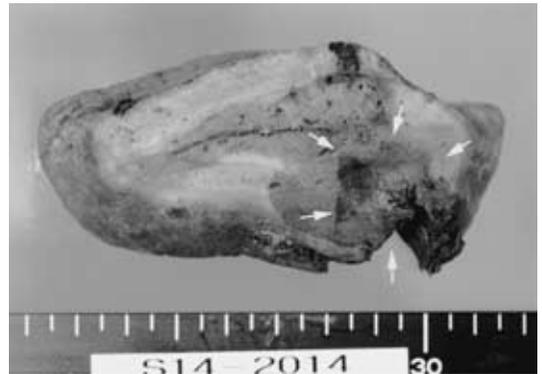
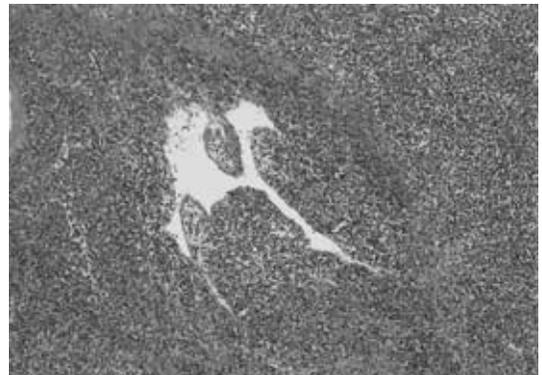


Fig. 4 Pathologic findings of the spleen showing diffuse infiltration by the ATL cells.



に明らかな腫大は認められなかった (Fig. 2)。

以上より、脾破裂による腹腔内出血を原因とした出血性ショックの診断で緊急開腹術を施行した。

手術所見：腹腔内には約 2,500ml の凝血塊を混じた血液の貯留を認めた。腸間膜および傍大動脈リンパ節など、明らかな腹腔内リンパ節腫大は認めなかった。術前の造影 CT で指摘された脾臓の横隔膜面に破裂創を認め、同部よりの出血が見られたため脾臓摘出術を施行した。摘出された脾臓は 13×10×5.5cm、重量 540g であった (Fig. 3)。

病理組織学的所見：脾臓の皮髄構造は破壊され消失しており、被膜下まで核の切れ込みの強い脳

回状核を有する細胞 (ATL 細胞) のび慢性浸潤が見られた。血管浸潤が著明で、破裂創近傍には梗塞巣も見られた。明らかな外傷の既往もなく ATL の脾臓への浸潤に伴う脾破裂と考えられた (Fig. 4)。

術後経過：出血に伴う血小板減少があり、術後ドレーンよりの出血に悩まされたが、血小板輸血、濃厚赤血球輸血にて保存的に軽快した。現在他院にて化学療法施行中である。

考 察

成人 T 細胞性白血病 (ATL) は、ヒト T 細胞向性ウイルス I 型 (HTLV-I) の感染によって発症す

る。40歳以上の中高齢者に多く、男女比は1.2と男性にやや多い。HTLV-Iキャリアは本邦では西南日本に偏在し、当院のある紀伊半島南部もATL多発地域に属する。我が国のキャリアはおよそ120万人と考えられ、そのうち年間約600~700人ほどがATLを発症すると推測されている。もっとも多い症状はリンパ節腫脹であり60~70%にみられ、次いで皮膚症状が約半数に認められる。肝脾腫は3割程度にみられるが、脾破裂をきたすことは非常にまれで、我々の症例以外に本邦報告例は田畑ら¹⁾の1例をみるのみであった。田畑ら¹⁾の症例も九州南部のATL多発地域に属することは特筆すべき点である。

特発性脾破裂はまれであるが、血液悪性疾患における脾破裂は致死率が高く重大な合併症の1つである。脾破裂を来す基礎疾患として、以前は、腸チフス、結核、マラリア、伝染性単核球症などの感染症の報告が多く見られたが、近年、白血病、悪性リンパ腫などの血液悪性疾患や転移性腫瘍の報告の比率が増加している²⁾⁻¹⁰⁾。なかでも白血病に伴う脾破裂の頻度は0.72%とまれであるとされる¹¹⁾。Bauerら¹²⁾は脾破裂をきたした血液悪性疾患53例の内訳を、急性骨髄性白血病11例(21%)、急性リンパ球性白血病10例(19%)、非ホジキンリンパ腫9例(17%)、慢性骨髄性白血病6例(11%)、ホジキン病5例(10%)、慢性リンパ球性白血病3例(6%)、その他9例(17%)と報告している。

血液悪性疾患に伴う脾破裂の機序についてHynesら¹³⁾は(1)腫瘍細胞の被膜下への浸潤による機械的作用(2)脾梗塞に伴う被膜下血腫と被膜破裂(3)血液凝固能障害による被膜下血腫、をあげている。我々の症例では、血液凝固能障害はみられなかったが、腫瘍細胞は被膜下まで浸潤し、破裂創周囲には梗塞巣も見られたため(1)もしくは(2)の機序が考えられた。

Hawkinsら¹⁴⁾は、白血病に伴う脾破裂の予後につき慢性白血病では平均生存期間は23か月、急性白血病では5か月と報告している。ATLに伴う脾破裂の症例は稀少であり、はっきりとした予後は不明である。特に本症例のような急性型のATL

では予後不良であるといわれているが、長期生存例も見られており術後早期よりの多剤併用化学療法に期待がもたれる。

また、Bauerら¹²⁾によると、血液悪性疾患における脾破裂で、外科的治療を受けた患者の救命率は78%であり、受けなかった症例は大多数が死亡したと報告している。我々の症例では、術前にショック状態であり、循環動態が不安定であったため緊急手術を施行した。しかし、近年、外傷性脾破裂の治療法として、循環動態次第ではあるが、選択的脾動脈塞栓術が行われる機会も増加している。病的な脾臓を温存することに関する議論の余地はあるが、症例によっては非侵襲的治療法として、経皮的脾動脈塞栓術による止血を選択することも考慮すべきであると考えられた。

文 献

- 1) 田畑雄雄, 迫田晃郎, 田中貞夫ほか: 脾破裂をきたした成人T細胞性白血病の1例. 癌の臨 37: 784-788, 1991
- 2) 石田久人, 武井伸之, 舩渡英理ほか: 脾破裂をきたした伝染性単核球症の1例. 日消病会誌 88: 1275-1279, 1991
- 3) 宮崎一秀, 鈴木 忠, 石川雅健ほか: 脾破裂をきたした慢性骨髄性白血病の1症例. 日救急医会関東誌 13: 592-593, 1992
- 4) 土橋史明, 倉石安庸, 小林 直ほか: 脾破裂を伴った悪性リンパ腫の1例. 臨血 34: 190-193, 1993
- 5) 松井 寛, 安藤重満, 榎原堅式ほか: 悪性リンパ腫を基礎疾患とした脾破裂の1例. 日消外会誌 27: 2166-2170, 1994
- 6) 大野友彦: 巨脾破裂を初発症状とし、脾摘術後著明な血小板数の増加を来し、Etoposide・INF- α 投与により諸症状の改善をみたCMLの1例. 診療手帖 122: 37-39, 1994
- 7) 三好 毅, 内藤毅嗣, 井上輝美ほか: 脾破裂をきたした急性骨髄性白血病の1例. 総合臨 45: 2248-2252, 1996
- 8) 小角卓也, 浮草 実, 野村明成ほか: 脾破裂を初発症状とした悪性リンパ腫の1例. 外科 60: 1805-1809, 1998
- 9) 斎藤一之, 木村壽子, 高田 綾ほか: 脾破裂により突然死した悪性リンパ腫の1剖検例. 法医の実験と研 36: 203-209, 1993
- 10) Hyun BH, Varga CF, Rubin RJ: Spontaneous and pathologic rupture of the spleen. Arch Surg 104: 652-657, 1972

- 11) Canady MR, Welling RE, Strobel SL : Splenic rupture in leukemia. *J Surg Oncol* 41 : 194-197, 1989
- 12) Bauer TW, Haskins GE, Armitage JO : Splenic rupture in patients with hematologic malignancies. *Cancer* 48 : 2729-2733, 1981
- 13) Hynes HE, Silverstein MN, Fawcett KJ : Spontaneous rupture of the spleen in acute leukemia. Report of 2 cases. *Cancer* 17 : 1356-1360, 1964
- 14) Hawkins JA, Mower WR, Nelson EW : Acute abdominal conditions in patients with leukemia. *Am J Surg* 150 : 739-742, 1985

Spontaneous Splenic Rupture in a Case of Adult T Cell Leukemia

Eiji Minato, Ippei Fujino, Nobuhito Sugihira, Kazuo Matsumoto, Kouichi Shima and Chikao Miki*

Shingu Municipal Medical Center

Second Department of Surgery, Mie University School of Medicine*

A 72-year-old man was admitted to our hospital presenting with hypotension and abdominal distension. Laboratory findings on admission revealed an abnormally increased number of leucocytes, composed of atypical lymphocytes and an elevated serum level of anti HTLV-1 antibody, suggestive of adult T cell leukemia (ATL). Abdominal CT scan showed a massive fluid collection and a laceration of the spleen. Emergency laparotomy revealed a massive hemoperitoneum due to rupture of the spleen, and the spleen was excised. Histologically, the spleen was infiltrated with ATL cells. Spontaneous splenic rupture due to leukemia is relatively rare. We report on this case together with some bibliographic comments.

Key words : spontaneous splenic rupture, adult T cell leukemia

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 36 : 1571-1574, 2003]

Reprint requests : Eiji Minato Shingu Municipal Medical Center
18-7 Hachibuse, Shingu, 647-0072 JAPAN
