

腎門部に発生した毛細血管腫の1例

及川 真亮, 畠山 真吾, 濱野 逸人
 田中 壽和, 田中 芳美, 成田 拓磨
 野呂 大輔, 萩原 和久, 大山 力
 弘前大学大学院医学研究科泌尿器科学講座

CAPILLARY HEMANGIOMA IN RENAL HILUM; A CASE REPORT

Masaaki OIKAWA, Shingo HATAKEYAMA, Itsuto HAMANO,
 Toshikazu TANAKA, Yoshimi TANAKA, Takuma NARITA,
 Daisuke NORO, Kazuhisa HAGIWARA and Chikara OHYAMA
The Department of Urology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

A 76-year-old woman with a capillary hemangioma in renal hilum is reported. She was referred to our hospital with left cystic renal tumor detected by ultrasonography during the hepatitis C follow-up. Computed tomography revealed a retroperitoneal tumor in the left renal hilum with contrast effect. A hypervascular tumor in the renal hilum with severe fibrous adhesion was observed with laparoscopy and open tumorectomy was indicated. However, left radical nephrectomy was required because of severe adhesion. Histopathologic examination revealed capillary hemangioma without malignancy. Because preoperative diagnosis of capillary hemangioma was challenging, surgical excision was selected as a treatment for this rare entity.

(Hinyokika Kiyo 60 : 33-37, 2014)

Key words : Capillary hemangioma, Renal hilum

緒 言

毛細血管腫は全身のどの部位にも発生するが、腎門部に生じる毛細血管腫は稀である。画像所見からの術前診断は難しく、悪性疾患を考慮し摘出する必要があると考えられる。今回われわれは腎門部に発生した毛細血管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：76歳，女性

主 訴：左腎門部嚢胞性腫瘍

既往歴：十二指腸潰瘍，高血圧，C型慢性肝炎

家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：2012年5月，C型慢性肝炎経過観察のための腹部超音波検査で左腎門部に嚢胞状腫瘤を認めた。精査加療のため当科紹介となった。

入院時現症：身長136.4 cm，体重50 kg，血圧124/74 mmHg，脈拍67/分，整。体表リンパ節は触知せず。その他，異常所見なし。

血液生化学検査：異常所見なし。

画像所見：腹部CTでは左腎門部に，辺縁が造影効果を有する大きさ(44×31×64 mm)の嚢胞性腫瘤を認めた。栄養血管として腎動脈が考えられたが，交通性は不明であった。腫瘍は脾臓，腸管など周囲臓器とも接していた(Fig. 1)。腎門部に発生する腫瘍の鑑別診

断として，脂肪肉腫，平滑筋肉腫，腎血管筋脂肪腫，悪性リンパ腫，神経原性腫瘍，睪尾部腫瘍，血管腫などが考えられた。血管に富み生検困難な部位のため，まず，腹腔鏡下にて周囲との連続性を確認したのち可能な限り腹腔鏡で摘出を試みる事となった。

手術所見：腹腔鏡検査にて睪との連続性がないことを確認した。しかし，腎頸部の癒着が強く剥離困難であったため，腹部正中切開での開腹手術へ移行した。腫瘍は新生血管に富み易出血性であった。一部腸管膜と癒着していたため，大動脈前面を大きく露出させ腎門部周辺に到達した。腫瘍と腎茎部が強固に癒着しており腎周囲を剥離後に腎茎部を処理した(Fig. 2)。腎動脈を結紮すると腫瘍は虚脱し，左腎と一塊に腫瘍を摘出した(手術時間2時間39分，出血量：550 ml)。

摘出標本：腫瘍は左腎および，腎静脈と著しく癒着していた。腫瘍自体は軟らかく，一部に分葉状構造を呈し，内容物は茶褐色，一部ゲル状であった(Fig. 3)。

病理組織学的所見：拡張した毛細血管様の小型血管の増生が認められた。血管内皮細胞の核に明らかな異型はみられなかった(Fig. 4A)。血管内皮マーカーであるCD31(Fig. 4B)，CD34(Fig. 4C)，von-Willebrand factor VIII(Fig. 4C)が陽性であった。他に卵巣癌のマーカーであるCA125が陰性，悪性中皮腫のマーカーであるcytokeratin 5/6やcalretinin，Hector Battifora-

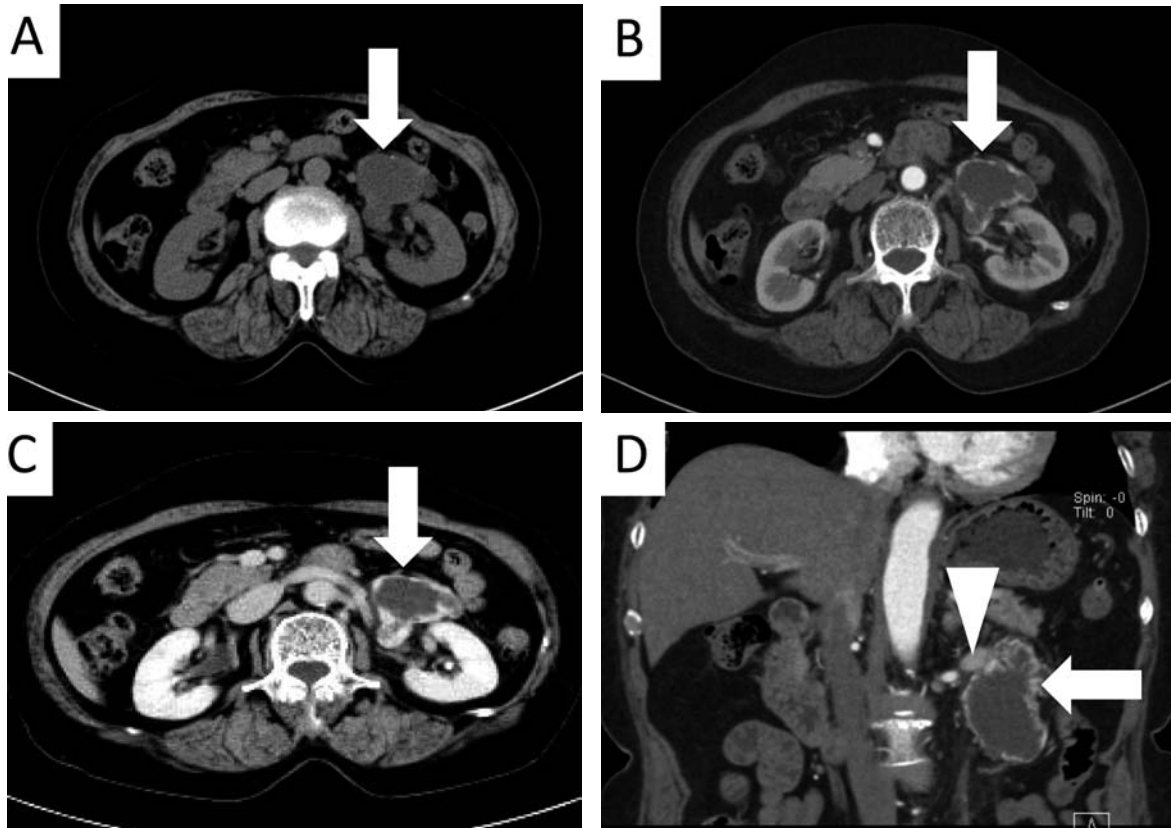


Fig. 1. Abdominal CT showed cystic tumor in left renal hilum with contrast effect (A; without contrast media, B; arterial phase, C; venous phase, D; coronal section image of arterial phase).

mesothelin-1 (HBME-1) も陰性, リンパ管のマーカーである podoplanin も陰性であり血管由来の毛細血管腫の所見であった。

考 察

毛細血管腫は血管内皮細胞が異常に増殖するが, 毛細血管形態は正常パターンを呈するものを指す. 通常は徐々に退縮し, 悪性化はしないとされている^{1,2)}. 発生部位は主に皮膚 (莓状血管腫), 他に皮下, 口腔内, 口唇, 肝臓に発生するが, 全身どの部位にも発生する^{1,3,4)}.

腎実質の血管腫は多数報告^{1,5)}があるが, 腎周囲脂肪組織に発生した毛細血管腫はきわめて稀で, 検索しえた限りでは12例^{1,3,5)}を認めるのみであった. 文献上, 悪性化した報告はないが, 報告が少ないため, 他の部位に発生する毛細血管腫と同様に悪性化せず徐々に退縮するかどうかは不明である. 造影 CT 検査にて造影効果を認めるため, 悪性腫瘍との鑑別は難しく, 術前診断は困難とされている^{5,6)}. 今回われわれが経験した症例でも, 鑑別診断として脂肪肉腫, 平滑筋肉腫, 腎血管筋脂肪腫, 悪性リンパ腫, 神経原性腫瘍, 腓尾部腫瘍などを考え, 腹腔鏡検査にて診断し, その後切除を試みたが癒着が強く, その後開腹手術へ移行したが, 手術は決して容易なものではなかった. 腫瘍

は腸管, 左腎, 腎静脈血管と著しく癒着しており結局腎摘除術を余儀なくされた. 術中所見は悪性腫瘍を疑わせたが, 病理結果は毛細血管腫で悪性所見は認めなかった. 過去の報告にも術前画像診断できた報告はなく, 多くは手術診断に委ねられているのが現状である.

腎周囲脂肪組織に発生した毛細血管腫12例と本症例とを比較すると, 共通点として, 1) いずれも無症候性で, 術前診断が困難であり外科的治療がされたこと, 2) 経過観察中に再発例はないこと, 3) ほとんどの症例で発生母地が不明であったことがあげられる. 異なる点は, 他の12例の腫瘍径は中央値で 2 cm, 最大でも 3.5 cm であったのに対し本症例では 6.4 cm とやや大きかったことであった. 腎門部に発生した毛細血管腫は稀な疾患なため不明な点が多く, 症例の蓄積が必要である.

結 語

腎門部に発生した毛細血管腫の 1 例を経験した. 良性疾患であるが, 画像所見からの術前診断は難しいため診断と治療を兼ね手術療法が標準治療と考えられた.

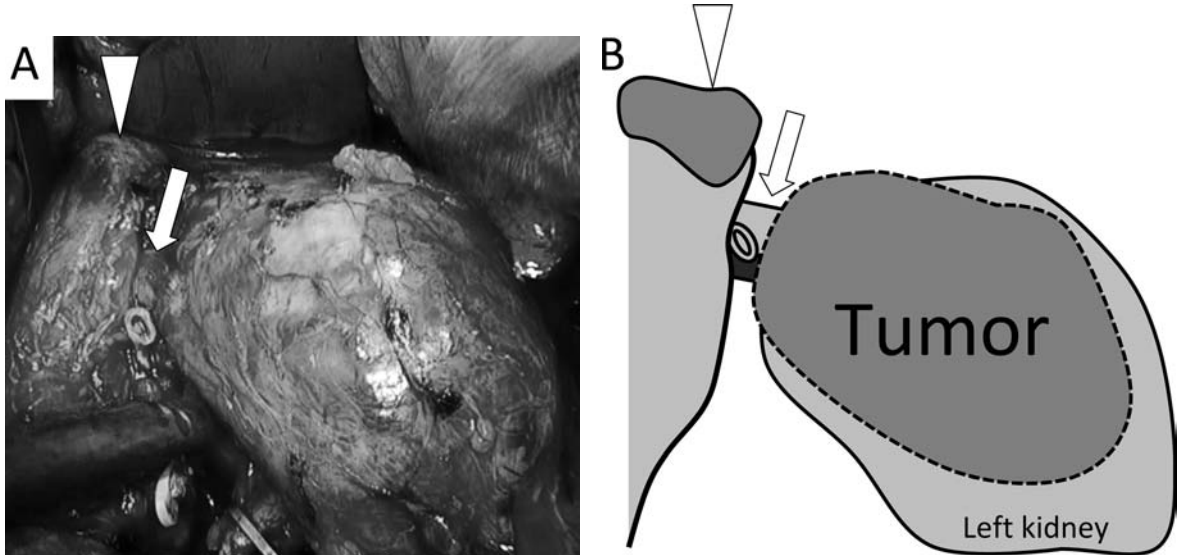


Fig. 2. Intra-operative findings of tumor (A). The pancreas tail was not connected with tumor in renal hilum (arrow; renal vein, arrow head; pancreas tail) illustration of anatomical position between tumor and kidney (B).

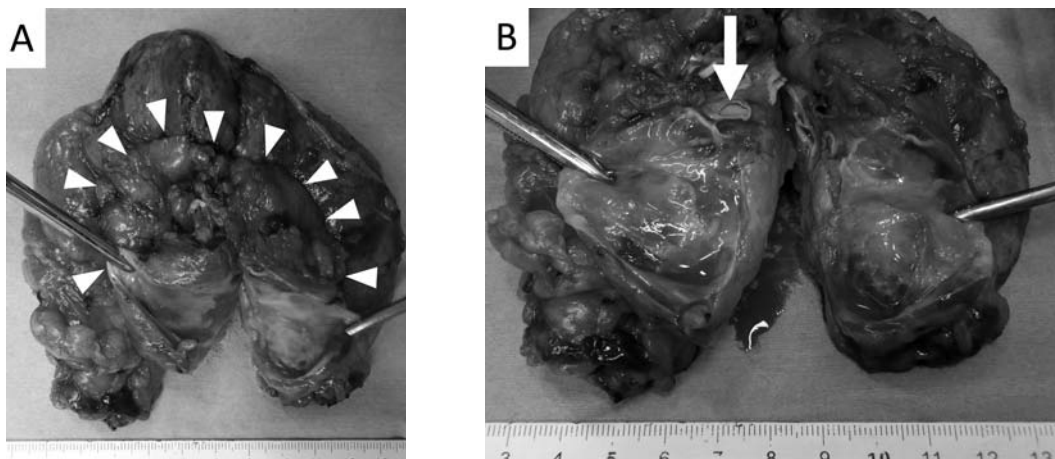


Fig. 3. Macroscopic appearance of tumor and left kidney. Severe fibrotic adhesion was observed between tumor and renal vein. The tumor was soft, and segmental structure (partition bulkhead) was observed within the tumor. Blackish brown liquid was observed as tumor content (arrow; renal vein, arrow heads; tumor margins).

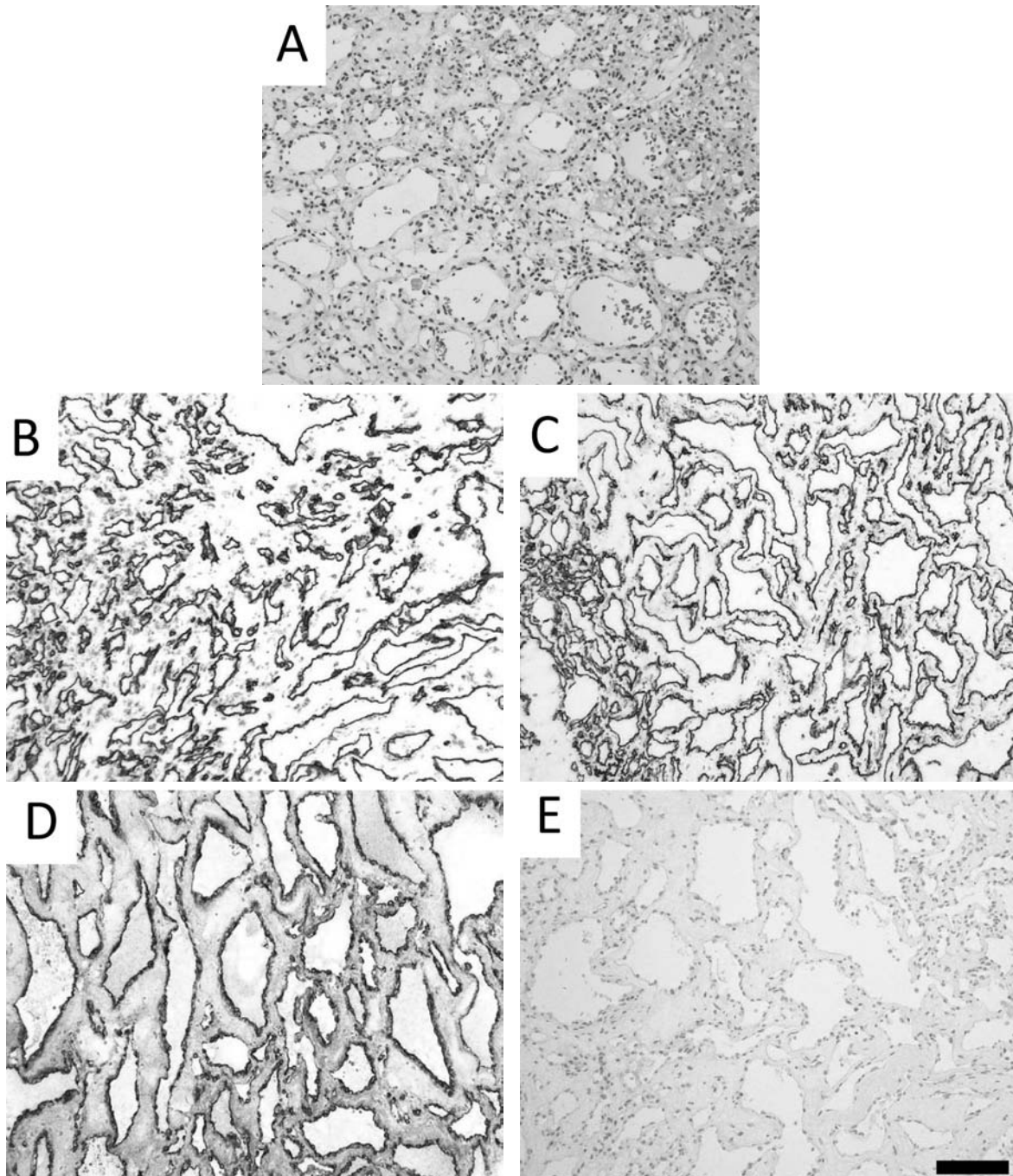


Fig. 4. Histological examination proved no malignancy in tumor vasculature (A; hematoxylin-eosin stain staining, B; CD31, C; CD34, D; von Willebrand factor VIII, E: cytokeratin 5/6). We ruled out ovarian tumor, malignant mesothelioma and lymphatic endothelial cells by immunohistochemistry test of CA125, calretinin, Hectortattifora-mesothelin-1 (HBME-1) and podoplanin (scale bar = 100 mm).

文 献

- 1) Mehta V, Ananthanarayanan V, Antic T, et al.: Primary benign vascular tumors and tumorlike lesions of the kidney: clinicopathologic analysis of 15 cases. *Virchows Arch* **461**: 669-676, 2012
- 2) Montgomery E and Epstein JI: Anastomosing hemangioma of the genitourinary tract: a lesion mimicking angiosarcoma. *Am J Surg Pathol* **33**: 1364-1369, 2009
- 3) Vasquez E, Aulivola B, Picken M, et al.: Capillary hemangioma masquerading as a renal artery pseudoaneurysm. *Urology* **79**: 987-989, 2012
- 4) Kryvenko ON, Gupta NS, Meier FA, et al.: Anastomosing hemangioma of the genitourinary system. *Am J Clin Pathol* **136**: 450-457, 2011
- 5) Brown JG, Folpe A, Rao P, et al.: Primary vascular tumors and tumor-like lesions of the kidney: a clinicopathologic analysis of 25 cases. *Am J Surg Pathol* **34**: 942-949, 2010

- 6) Rutherford E, Manners J, Smart J, et al: Renal hemangioma: a diagnostic challenge. Clin Radiol **61**: 370-373, 2006

(Received on July 29, 2013)
(Accepted on September 20, 2013)