

自然破裂を疑った脾類表皮嚢腫の1例

和歌山県立医科大学消化器外科学教室

金 秀男, 勝見 正治, 田伏 克惇, 河野 裕利, 野口 博志

[原稿受付: 昭和56年9月7日]

A Case of Suspected Spontaneous Rupture of Splenic Epidermoid Cyst

HIDEO KIM, MASAHARU KATSUMI, KATSUYOSHI TABUSE,
HIROTOSHI KONO and HIROYUKI NOGUCHI

Department of Gastroenterological Surgery, Wakayama Medical College

Epidermoid cysts of the spleen are relatively rare and most of them are incidentally found by the presence of a mass in the left upper quadrant.

In this paper, a case of suspected spontaneous rupture of splenic epidermoid cyst is reported. The patient was a 17-year-old girl and hospitalized on Feb. 18, 1980 with sudden onset of epigastralgia. Her clinical course and operative and pathological findings suggested that spontaneous rupture of splenic epidermoid cyst was strongly suspected.

I はじめに

脾嚢腫は脾腫の原因としては稀であり、またその症候学的特徴の乏しさから偶然にみつけれられてきた症例が多い^{8, 24)}。今回我々は、自然破裂を疑わしめた脾類表皮嚢腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

患者: 17才, 女性

主訴: 腹痛

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 11才の時 Herpes zoster に罹患

現病歴: 昭和55年2月16日夜半より突然心窩部鈍痛が出現し、翌朝より左肩放散痛を伴って漸次腹部全体に痛みが拡がってきたため翌日某病院へ入院。入院当初、左上腹部を中心とする痛みと腹膜刺激症状が認められたが約3日間で軽快した。しかしながら、数回にわたる一般血液検査(表1)で、赤血球数の減少、ならびに一時期血小板数と白血球数の減少も認められた。肝機能ならびに検尿では特に異常は認められなかった。肝・脾シンチグラムにて脾腫と cold area が認められ(写真1)、脾破裂の疑いで精査を兼ね昭和55年3月4日に当科へ紹介されてきた。

当科入院時現症と検査成績: 入院時全身状態は良好で、結膜の軽度の貧血と、腹部触診上左季肋部の圧痛

Key words: Splenic cyst, Epidermoid cyst, Spontaneous rupture, Pancytopenia, Partial splenectomy.

索引語: 脾嚢腫, 類表皮嚢腫, 自然破裂, 汎血球減少症, 部分的脾摘出術.

Present address: Department of Gastroenterological Surgery, Wakayama Medical College, 7-Bancho Wakayama, Wakayama, 640, Japan.

表1 入院時検査成績

一般血液検査	2月18日	2月20日	2月22日	2月25日
赤血球数 ($\times 10^4/\text{mm}^3$)	313	255	283	334
ヘモグロビン (g/dl)	9.5	7.9	8.7	10.2
ヘマトクリット (%)	27.9	23.0	25.1	30.3
白血球数	7200	2700	2500	6500
好中球 (%)	71	67	66	83
好酸球	0	1	0	0
好塩基球	0	0	0	0
単球	1	0	3	1
リンパ球	28	32	31	16
網赤血球 (%)	12	51	17	14
血小板数 ($\times 10^4/\text{mm}^3$)	10	9	9	13
肝機能検査 尿検査	異常なし			

ならびに脾が約2横指触知される以外特記すべき所見は認められなかった。血液検査では、軽度の貧血が認められる他は特に異常はなかった。腹部単純撮影では、左季肋部に一致して腫瘤陰影が認められた(写真2)。上部消化管X線透視ならびに注腸透視では、胃底部大彎側の右方圧排と、結腸脾彎曲部の内下方への圧排所

見が認められた(写真3)。腹部超音波検査にて、左季肋部に約 $15 \times 10 \times 10$ cm 大の cystic pattern がみられ、腹部 C-T スキャン(写真4)でも、脾の上極にあたる部位に円形の均一な囊腫様所見がみられた。以上より脾囊腫の自然破裂の疑いで、昭和55年4月10日に手術を施行した。

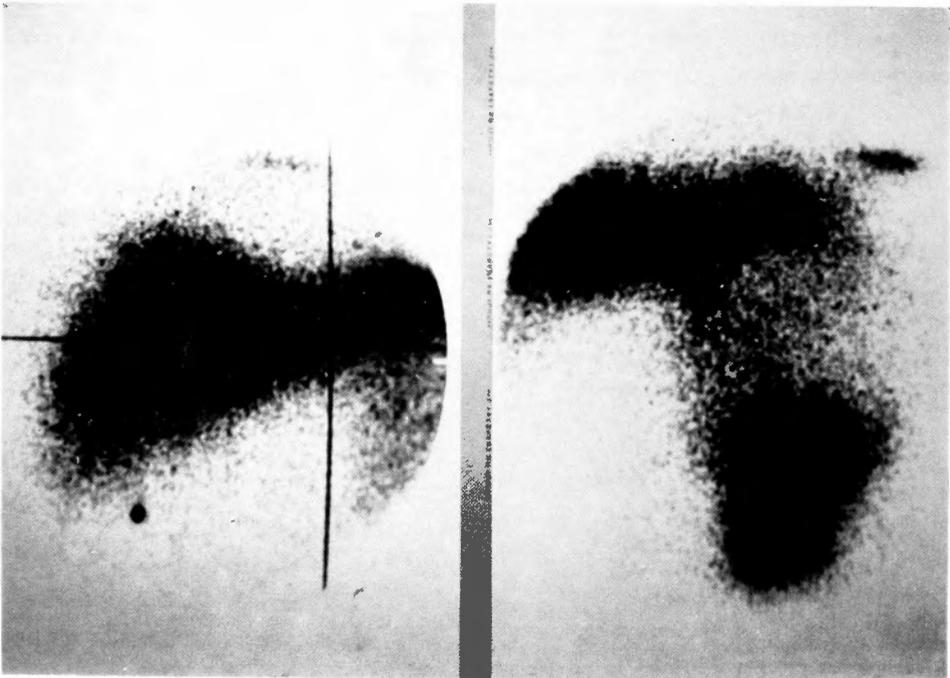


写真1 肝・脾シンチグラム
splenomegaly と cold area が認められる。

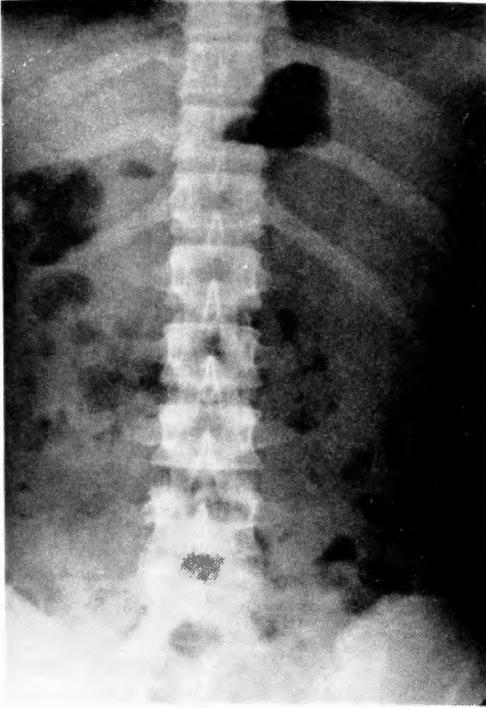


写真2 腹部単純撮影
左季肋部に一致して腫瘤陰影がみられる。

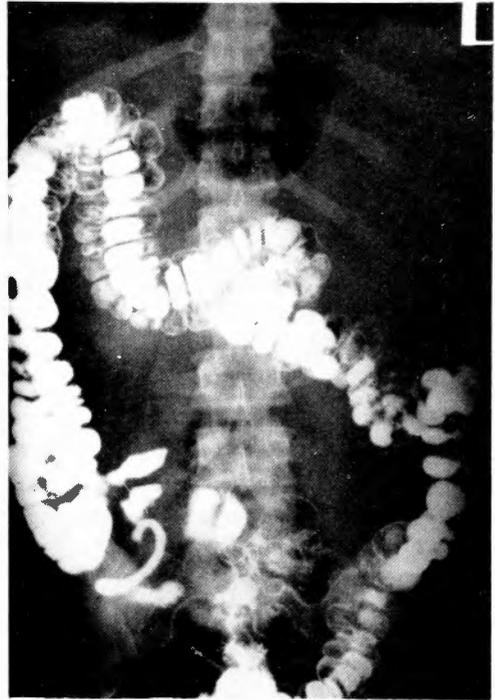


写真3 注腸透視
結腸脾彎曲部の内下方への圧排がみられる。

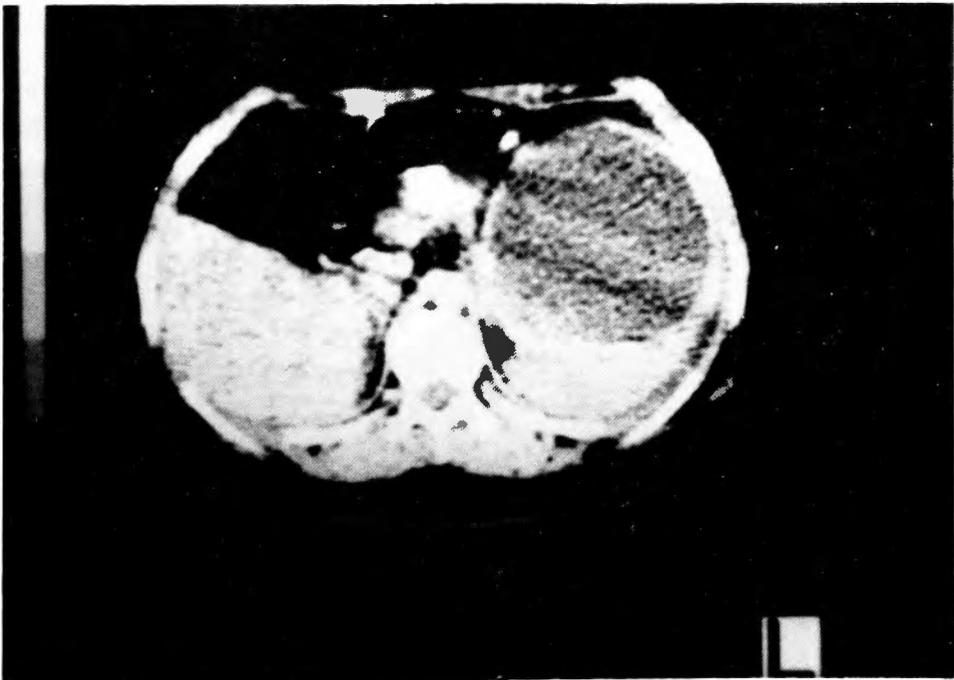


写真4 腹部C-Tスキャン
脾上極に円形の均一な嚢腫様所見が認められる。

手術所見(図1)：腹腔内を検するに、小児頭大の脾の中央部と上極部に、各々手拳大および鶏卵大の嚢腫が認められた。線維性癒着が脾と肝左葉・横隔膜および左側腹壁とに認められ、また大網の一部が淡褐色に着色して破裂の既往を疑わせた。脾の実質部は、ほぼ下極の一部にしか認められなかったため total splenectomy を施行した。

摘出標本(写真5)：脾の総重量は 1200 g、嚢腫の内容物は混濁した黄褐色の液体で約 700 ml 認められた。大きさは $21 \times 12.5 \times 11$ cm 大で、嚢腫は中央部のものが $14 \times 10 \times 10$ cm、上極のものが $8 \cdot 6.5 \times 7$ cm で、混濁した灰色～黄土色をしていた。

病理組織所見(写真6)：嚢腫壁は重層扁平上皮から成り、上皮下には膨化した膠原線維から成る厚い層が

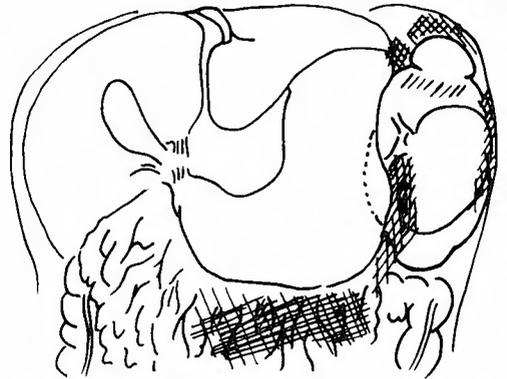


図1 開腹時所見シェーマ

■：脾と隣接臓器の線維性癒着ならびに大網の一部の色調の変化を示す。



写真5 摘出標本(剖面)



写真6 病理組織所見
重層扁平上皮の壁から成る類表皮嚢腫。
石灰化(←)

形成されており、石灰化は認められなかった。実質との境界部にヘモジリンを含むマクロファージの小集団と、多核白血球を中心とする炎症反応が認められ、また実質部はうっ血像を示し、脾柱静脈の拡大と、一部の中心動脈の hyaline arteriosclerosis が認められた。病理組織診断は、脾原発の類表皮嚢腫であった。

III 考 按

分類、頻度：脾嚢腫は、脾腫を示す疾患の内では稀な原因の1つで^{2, 8, 12)}、1829年 Andrall が剖検で初めて脾の皮様嚢腫を報告して以来、欧米では最近までに剖検例も含めて約600の非寄生虫性嚢腫が報告され^{27, 29)}、本邦でも1890年有田の脾の血管腫の報告以来1975年までに約120例が報告されてきた^{20, 23)}。その分類は、1940年に Fowler¹¹⁾ が打ち出して以来種々の修正が試みられ、現在では McClure & Altemeier の分類¹⁹⁾ が汎用されている。他に、臨床家ならびに病理学者の双方に受け入れられているものの1つに Rappaport の分類⁸⁾ や、臨床家によく利用される Martin の分類^{5, 18, 23)} が挙げられる。その内で、類表皮嚢腫は欧米の集計によれば約10%を占めるといわれ^{18, 27~29, 34)}、1979

年 Di Martio³⁰⁾ らは63例を集計した。本邦では寺田³⁵⁾ らによると約20%を占め、20例が集計されている。

病因、性・年齢：脾の類表皮嚢腫の病因に関しては現在のところ不明であるが、有力な説としては、胎生期脾原基への内胚葉性組織の迷入・化生説^{17, 28)} や、胎生期中胚葉性奇形による多潜性胚芽細胞の迷入・化生説^{13, 16, 35)} が挙げられる。本症例のように10才代に顕著にみられ^{2, 3)}、1973年 Blank & Campbell ら²⁾ によると51例中39例が20才以下で、最低年齢は6ヶ月²¹⁾、最高年齢は50才⁴⁾ であった。性差は一般に認められていない。

臨床症状 これは脾嚢腫全体にはほぼ共通した点であるが^{9, 24, 27)}、Blank & Campbell による脾類表皮嚢腫56例の検討の結果、約70%にあたる39例が腹部腫瘤の存在によってみつかり、患者はしばしば無症状で、ふつうは嚢腫の成長が遅いため^{15, 27, 28)}、漠然とした心窩部から左季肋部にかけての膨満感・圧迫感・不快感および鈍痛があるだけで、全身状態は概して良好である^{6, 28, 34)}。そして脾腫がある程度増大すれば隣接臓器の圧迫症状^{21, 27)}、すなわち消化管を圧迫して食後不快感・食欲不振・便秘・下痢・嘔気・嘔吐等、横隔膜の圧迫挙上による咳嗽・左胸痛・呼吸困難・動悸・左肩放散痛等、また稀に腎・尿路系を圧迫して頻尿・排尿障害・蛋白尿¹⁵⁾・腎性高血圧症^{15, 26)}等を引き起こす。ときには脾嚢腫の破裂^{1, 17, 35)}、出血^{29, 36)}、感染^{5, 7)}、茎捻転³⁾をきっかけとしてみつかる場合もある。今回の症例は、脾嚢腫の自然破裂の疑いをきっかけとしてみつかったのであるが、明らかな前駆症状および腹部打撲等の既往もなく自然破裂を起こすことは稀で (splenic hemangioma では約25%)^{13, 24)}、しかも脾の類表皮嚢腫に限定すれば、我々が調べた限りでは1970年の Watkins³⁶⁾ らの1症例のみである。この症例では、腹腔内の血液ならびに凝血塊と、明らかな嚢腫壁の裂け目が認められ、病理組織学的にも出血部を多く伴った嚢腫壁をもっていたことが確認された。しかしながら、我々の症例は、前述した臨床経過・血液検査・術中所見ならびに病理組織学的所見から、発症時自然破裂が生じていたものと考えられ、しかもその程度が軽くてすんだためかどうかは不明であるが、何らかの機転が働いていったん保存的治療により臨床症状の軽快をみている。さらにこの一時期に汎血球減少が認められたが、これに関しては血液学的変化を伴った脾嚢腫例を文献上散見^{10, 13, 22, 24, 30, 31)}するが、一過性の脾機能亢進症の合併というよりはむしろ、腹腔内

ないし囊腫内への出血による消費と、抗生物質投与等によると思われる一過性の骨髓機能抑制とが相まって起こったものと考えたが、その因果関係は不明である^{10, 24)}。

診断、手術適応：脾嚢腫の術前診断は概して困難なことが多く^{2, 9, 12, 17, 24)}、1) 脾のものかどうか、2) 脾のものなら原発性か続発性か、3) (cystic か solid か、の3点を明らかにすることで目標が達せられるわけであるか²⁷⁾。現在では種々の検査技術の発達と導入によりある程度可能になってきており^{14, 31)}、さらにはその組織型まである程度推察できるとする報告までみられる¹⁴⁾。そして良性疾患である脾嚢腫の手術適応に関しては、1978年 Robbins²⁷⁾らがその合併症として挙げた破裂、出血、感染、悪性変化等を伴うことがあるので慎重に決定する必要性がある⁷⁾。

治療：従来より total splenectomy が第1選択であったが^{10, 19, 23, 25, 27, 28)}、最近の routine total splenectomy に対する批判から、このような症例に対しても可能ならば脾の温存が望ましいという考え方があり、partial splenectomy 可能症例に対しては積極的に脾の温存がなされることが望ましい。我々の教室でも、過去に脾摘後の合併症を検討³²⁾して脾の役割の重要性を再認識し、最近経験した脾嚢腫の1症例に対し、当教室で試案中のマイクロ波組織凝固装置を使って partial splenectomy を行い成功した治験例を得ている³³⁾。

IV おわりに

自然破裂が強く疑われる脾の類表皮嚢腫の稀な1例を報告するとともに、若干の文献的考察ならびに私見を述べた。

文 献

- 1) Allen RP, Condon VR: Epidermoid cyst of the spleen in children. *Am J Roentgenol* **86**: 534-539, 1961.
- 2) Blank E, Campbell JR: Epidermoid cysts of the spleen. *Pediatrics* **51**: 75-84, 1973.
- 3) Browne MK: Epidermoid cyst of the spleen. *Br J Surg* **50**: 838-841, 1963.
- 4) Coleman WO: Epidermoid cyst of the spleen. Report of two cases. *Am J Surg* **100**: 475-479, 1960.
- 5) Davis CE, Montero JM, et al: Large splenic cysts. *Ann Surg* **173**: 686-691, 1971.
- 6) Denneen EV: Hemorrhagic cyst of the spleen. *Ann Surg* **116**: 103-108, 1942.
- 7) Dibble JB, Weigent CE: Epidermoid cyst of the

- spleen presenting as an abdominal emergency. Report of a case. *JAMA* **194**: 1114-1146, 1965.
- 8) DiMarzio DJ: Epidermoid cyst of the spleen. Report of case and review of literature. *J AOA* **79**: 168-173, 1979.
- 9) Eisenstat TE, Morris DM, et al: Cysts of the spleen. Report of a case and review of the literature. *Am J Surg* **134**: 635-637, 1977.
- 10) Ferris DO, Dockerty MB, et al: Cysts of the spleen. *Minnesota Med* **41**: 614-618, 1958.
- 11) Fowler RH: Cystic tumors of spleen. *Int Abstr Surg* **70**: 213-223, 1940.
- 12) Garfunkel F: Epidermoid cyst of the spleen. Case report. *J Nucl Med* **17**: 196-199, 1975.
- 13) Husni MEA: The clinical course of splenic hemangiona. With emphasis on spontaneous rupture. *Arch Surg* **83**: 681-687, 1961.
- 14) 岸川 高, 徳永光雄, 他: 脾腫瘍. とくに放射線診断について. *臨床放射線* **23**: 267-277, 1978.
- 15) Lambie RW, Rubin S, et al: Epidermoid cyst of the spleen. Case report. *Mo Med* **60**: 27-29, 1963.
- 16) Linn HJ, Ellias EP: Epidermoid cyst of the spleen. *Am J Clin Path* **19**: 558-564, 1949.
- 17) Lippitt WH, Akhavan T, et al: Epidermoid cyst of the spleen with rupture and inflammation. *Arch Surg* **95**: 74-78, 1967.
- 18) Martin JW: Congenital splenic cysts. *Am J Surg* **96**: 302-308, 1958.
- 19) McClure RD, Altemeier WA: Cysts of the spleen. *Ann Surg* **116**: 98-102, 1942.
- 20) 三島秀雄, 勝見正治, 他: 脾嚢腫の1例. *和歌山医学* **27**: 171-176, 1940.
- 21) Montgomery AH, McEnery ET, et al: Epidermoid cysts of spleen. *Ann Surg* **108**: 877-884, 1938.
- 22) 森川景子, 仁木洋子, 他: 著明な血小板減少が先行した脾嚢腫の1例. *臨床血液* **19**: 252-257, 1978.
- 23) Park JY, Song KT: Splenic cyst. A case report and review of literature. *Am Surg* **37**: 544-547, 1971.
- 24) Qureshi MA, Hafner CD: Clinical manifestations of splenic cysts. Study of 75 cases. *Am Surg* **31**: 605-608, 1965.
- 25) Qureshi MA, Hafner CD, et al: Nonparasitic cysts of the spleen. Report of 14 cases. *Arch Surg* **89**: 570-574, 1964.
- 26) Rakowski TA, Argy WP, et al: Splenic cyst causing hypertension by renal compression. *JAMA* **238**: 2528-2529, 1977.
- 27) Robbins FG, Yellin AE, et al: Splenic epidermoid cysts. *Ann Surg* **187**: 231-235, 1978.
- 28) Ross ME, Ellwood R, et al: Epidermoid splenic cysts. *Arch Surg* **112**: 596-599, 1977.

- 29) Sirinek KR, Evans WE: Nonparasitic splenic cysts. Case report of epidermoid cyst with review of the literature. *Am J Surg* **126**: 8-13, 1973.
- 30) Steidel RM, Cardy JD: Solitary cyst of spleen associated with hypersplenism. Report of case. *J Lancet* **77**: 45, 1957.
- 31) 角田 司, 添田修二, 他: 真性脾嚢腫の2例. *外科診療* **32**: 561-566, 1976.
- 32) 田伏克惇, 勝見正治, 他: 脾摘後合併症の検討. *日外宝* **49**: 893-899, 1980.
- 33) Tabuse K, Katsumi M: Microwave tissue coagulation in partial splenectomy for non-parasitic splenic cyst. *Arch Jpn Chir* **50**: 711-717, 1981.
- 34) Talerman A, Hart S: Epithelial cysts of the spleen. *Br J Surg* **57**: 201-204, 1970.
- 35) 寺田鉦一, 近藤慶二, 他: 脾嚢腫の1例と本邦101例の文献的統計的考察. *高知中病医誌* **4**: 121-141, 1977.
- 36) Watkins GL: Epidermoid cyst of the spleen with spontaneous rupture and massive hemoperitoneum. Case report. *Mo Med* **67**: 106-107, 1970.