

腎 Anastomosing hemangioma の 1 例

佐々木 禎¹, 嘉島 相輝¹, 小山 貴², 廣嶋 優子³
 天野 賢士¹, 高橋 修平¹, 奈良 健平¹, 小泉 淳¹
 山本 竜平¹, 沼倉 一幸¹, 齋藤 満¹, 成田伸太郎¹
 南條 博³, 佐藤 滋⁴, 羽瀧 友則¹

¹秋田大学大学院医学系研究科腎泌尿器科学講座, ²倉敷中央病院放射線診断科

³秋田大学医学部附属病院病理診断科, ⁴秋田大学医学部附属病院腎疾患先端医療センター

A CASE OF RENAL ANASTOMOSING HEMANGIOMA

Yoshiki SASAKI¹, Soki KASHIMA¹, Takashi KOYAMA², Yuko HIROSHIMA³,
 Kenji AMANO¹, Syuhei TAKAHASHI¹, Taketoshi NARA¹, Atsushi KOIZUMI¹,
 Ryohei YAMAMOTO¹, Kazuyuki NUMAKURA¹, Mitsuru SAITO¹, Shintaro NARITA¹,
 Hiroshi NANJO³, Shigeru SATOH⁴ and Tomonori HABUCHI¹

¹The Department of Urology, Akita University Graduate School of Medicine

²The Department of Radiology, Kurashiki Central Hospital

³The Department of Clinical Pathology, Akita University Graduate School of Medicine

⁴The Center for Kidney Disease and Transplantation, Akita University Graduate School of Medicine

A 65-year-old man was found to have a 1.7 cm right renal mass by follow-up abdominal computed tomography for left total nephrectomy after a traffic accident. The renal mass progressed slowly to 2.2 cm in three years and enhanced magnetic resonance imaging revealed marked T2 weighting hyperintensity of the lesion. Although a radiologist (TK) suggested the diagnosis renal anastomosing hemangioma preoperatively, we could not deny the possibility of renal cell carcinoma completely. Therefore, the patient underwent robot-assisted laparoscopic partial nephrectomy. The tumor was successfully removed without any renal arterial clamping or parenchymal excision. Histopathologically, the lesion was composed of capillary-size blood vessels lined by a single layer of endothelial cells, and was diagnosed as a renal anastomosing hemangioma. There were no signs of postoperative recurrence during the 3 month follow-up.

(Hinyokika Kyo 68 : 265-269, 2022 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_68_8_265)

Key words : Anastomosing hemangioma, Partial nephrectomy

緒 言

近年の画像検査や人間ドックの普及により, 偶発的に発見される小径腎腫瘍が増加している¹⁾. 腎腫瘍の中でも腎の血管腫は稀であり, anastomosing hemangioma はその一種として知られる²⁾. Anastomosing hemangioma は術前の診断が困難であることから, 摘除によって診断されることが多い³⁾.

今回われわれは, 悪性腫瘍との鑑別が困難であった腎 anastomosing hemangioma の 1 例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する.

症 例

患 者 : 65歳, 男性.

主 訴 : なし.

既往歴 : 1962年に溶連菌感染後糸球体腎炎. 1986年に外傷性左腎静脈損傷で左腎摘除. 1986年に輸血後C型肝炎.

家族歴 : 特記事項なし.

現病歴 : 1986年, 交通事故による左腎静脈損傷で後腹膜血腫を生じ, 左腎摘除術を施行された. その際の輸血によってC型肝炎を発症し, 1998年からC型肝炎治療および経過観察を行っていた. 2018年, フォロアップの腹部 CT 検査で右腎外側に造影効果を伴う17×9 mm の腫瘍を認め, 2021年の腹部 CT 検査で22×13 mm へと増大を認めた. 放射線科医師 (TK) に CT 検査の読影を依頼し, 腎 anastomosing hemangioma と診断された. 一方で, 腫瘍の増大傾向を認めることから悪性を完全には否定できないこと, また患者が外科的摘除および病理学的診断を希望したことから, 手術の方針となり当科へ入院した.

入院時現症 : 身長 176.8 cm, 体重 74 kg, 血圧 140/84 mmHg, 脈拍82回/分.

検査成績 : 血液検査では白血球数 3,900/μl, CRP <0.03 mg/dl と炎症反応を認めなかった. 血清クレアチニン値は 0.80 mg/dl と基準値内であった. その

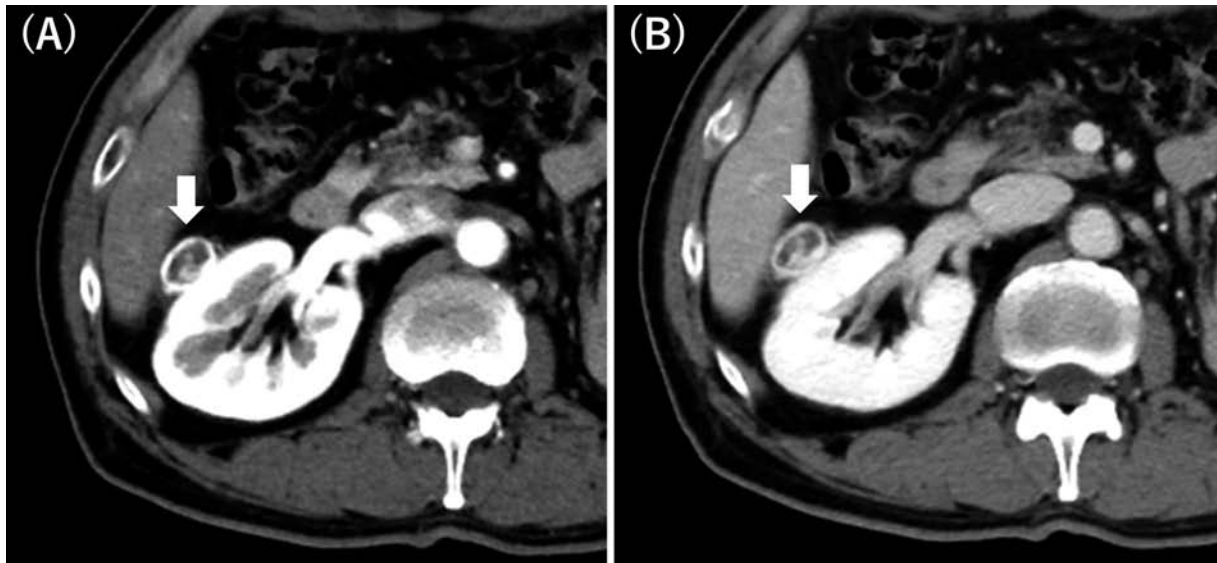


Fig. 1. Dynamic enhancement CT demonstrated a well-circumscribed solid tumor on the right kidney with peripheral enhancement in the arterial phase (A), and centripetal filling in the venous phase (B).

他血液一般検査，生化学検査に特記すべき所見を認めなかった。

画像所見：腹部超音波検査で，右腎に 19×19 mm 大の低エコーの腫瘤を認めた。腹部造影ダイナミック CT 検査では，右腎上極に腎と接する 22×13 mm 大の腫瘤を認め，動脈相で腫瘤辺縁が腎実質と同程度に増強され，静脈相では辺縁から内部に向かって造影される領域の拡大が認められた (Fig. 1A, B)。腹部 MRI 検査では，同部位に T1 強調像で低信号，T2 強調像で著明な高信号 (Fig. 2A, B) を認めた。脂肪抑制 T1 強調像を用いたダイナミック造影においても CT と同様に動脈相において辺縁部の造影効果を認め，静脈相で病変の中心部に向かって造影される領域の拡大を認めた (Fig. 2C, D)。以上の所見から anastomosing hemangioma が疑われた。

治療経過：2021年5月，ロボット支援腹腔鏡下腫瘍摘除術を施行した。後腹膜到達法で右腎にアプローチし，右腎の腹側上極に腫瘤を認めた。腫瘤は被膜に内包されており，腫瘤被膜と腎被膜は固着していたが，容易に鈍的剥離可能であった。腫瘤被膜と腎被膜との間を剥離すると，腫瘤の支配動静脈を認めたため，これをクリップした後に切離し，腫瘤を摘除した。腎動脈の遮断は要さなかった。摘出標本は $16 \times 16 \times 10$ mm 大の褐色の境界明瞭な結節性腫瘤であった。断面は赤褐色で海綿状であった (Fig. 3)。手術時間は2時間59分，出血量は121 mlであった。周術期合併症を認めなかった。

病理組織診断：毛細血管ないし類洞様血管の密な増生を主体とし，動静脈の介在，肉芽化，充鬱血，出血，フィブリンの析出，浮腫状間質の介在を認めた。血管内皮は単層性で腫大していた。背景に動静脈瘻様

の構造がみられ，拡張した静脈様の血管内腔に血管内皮細胞の密な増生を認めた。核異型などの悪性疾患を示唆する所見を認めなかった (Fig. 4A, B)。免疫組織化学染色では，増生する血管内皮細胞は CD31 陽性，CD34 陽性，Factor VIII 陽性，D2-40 陰性であり，約3%の Ki-67 陽性率であった (Fig. 4C~G)。腎細胞癌マーカー (RCC, CD10, PAX8, cytokeratin AE1/AE3) は陰性であった。

術後経過：術当日に膀胱留置カテーテルを抜去し，術後1日目にドレーンを抜去した。術後経過は良好であり，術後2日目に退院した。術後3カ月目の胸部腹部 CT 検査で再発および転移を認めなかった。

考 察

Anastomosing hemangioma は，腎や精巣に発生する良性血管病変として2009年に初めて報告された²⁾。その後，軟部組織・骨・傍脊椎・肺・脾臓などに発生することが知られ，現在では脾臓以外の実質臓器に広く発生しうる疾患であるとされている³⁾。これまでに腎および腎周囲の発生例は，自験例を含めて82例報告されている (Table)⁴⁻¹⁴⁾。本邦では副腎と縦隔での発生が報告されているが^{15, 16)}，腎に発生した anastomosing hemangioma の報告はなく，われわれが調べた限りでは自験例が本邦初である。腎 anastomosing hemangioma 82例の年齢中央値は51歳，腫瘤径中央値は2.0 cm であった。継時的なサイズ増大は認めないことが多いが，一方で自験例と同様に緩徐な増大を認めたとする報告もある¹⁷⁾。臨床症状は血尿，側腹部痛，背部痛，下部尿路症状などが報告されているが，これらは腫瘤による局所的な症状と考えられており，約50%は無症状であると報告されている⁴⁾。

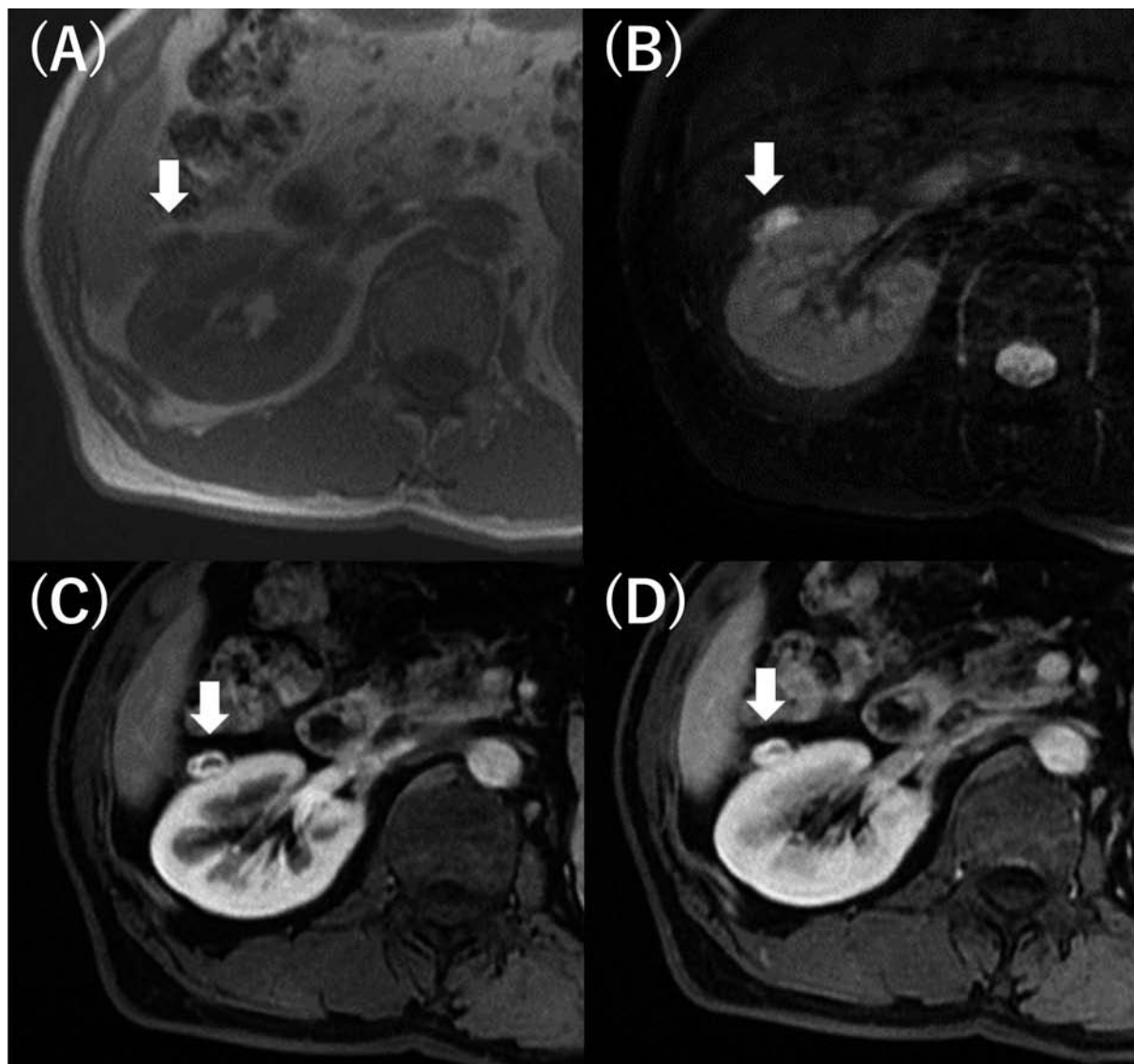


Fig. 2. Magnetic resonance imaging showed the hypointensity of the lesion in T1-weighted image (A) and the marked hyperintensity in fat-suppressed T2-weighted (B). Dynamic enhancement MRI in fat-suppressed T1-weighted images shows contrast effect on the margins in the arterial phase as in CT (C), and an expansion of the contrasted area toward the center of the lesion in the venous phase (D).



Fig. 3. The resected brown nodular mass was $16 \times 16 \times 10$ mm with well-defined borders.

画像所見では、超音波検査で低エコー、単純CT検査で内部不均一な低吸収病変であり、造影ダイナミックCT検査では辺縁から経時的・求心性に造影され、MRI検査では肝臓の血管腫と同様に、T1強調像で低信号、T2強調画像で高信号、造影後のT1強調像で強い造影効果を呈する⁹⁾。画像検査で不均一な造影効果を伴うことから、しばしば腎細胞癌との鑑別が困難であるとされる^{9,18)}。本症例では、MRI検査における特徴的な信号パターンに加えて、造影ダイナミックCT検査において腫瘍辺縁から経時的・求心性に造影される特徴的な所見を呈したことから、anastomosing hemangiomaと術前診断された。

肉眼所見では、周囲との境界は明瞭で、灰から赤褐色、断面は海綿状であるとされる³⁾。病理学的には小葉構造が欠如し、hob-nail状の血管内皮細胞を伴い巢

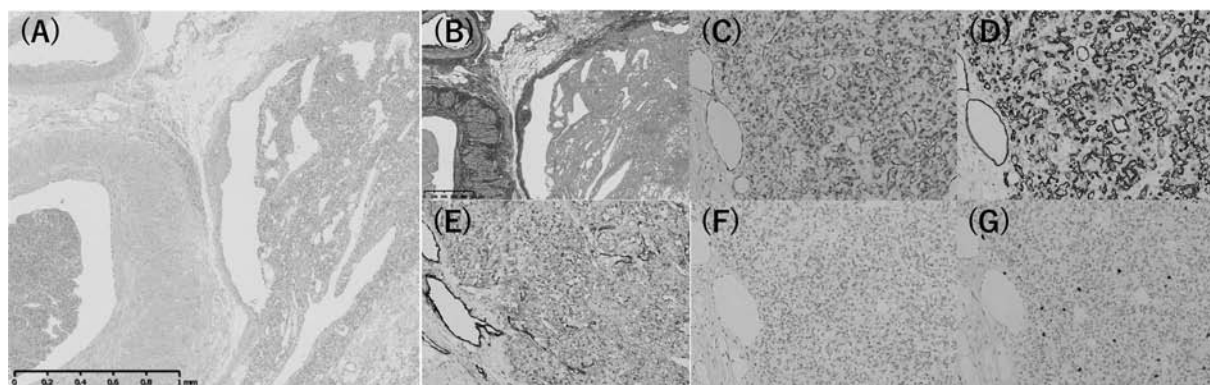


Fig. 4. Pathological examination revealed that the tumor was made up of capillary sized blood vessels lined by a single layer of endothelial cells in hematoxylin and eosin staining (A) and Elastica Masson staining (B). Immunohistochemical analysis showed positive for CD31 (C), CD34 (D), Factor VIII (E) and negative for D2-40 (E), and 3% positive for Ki-67 (F).

Table. Summary of previously reported cases of anastomosing hemangioma in the kidney

	n = 82
Median age (range)	51 (15-84)
Median follow-up month (range)	12 (1-156)
Gender	
Male	39
Female	22
Unknown	21
Localization	
Kidney	55
Perinephric	9
Unknown	18
Median Size (cm) (range)	2.0 (0.1-7.0)
Side	
Left	19
Right	19
Bilateral	7
Unknown	37
Symptoms	
None	41
Hematuria	8
Abdominal pain	5
Hematoma	5
Back pain	2
Lower urinary symptoms	1
Unknown	20
Treatment	
Total nephrectomy	39
Partial nephrectomy	7
Lesion resection	2
Unknown	34
Recurrence	
No	79
Yes	0
Unknown	3

状に増生する大小の血管から構成されており、硝子様小球、局所的な血管への進展、髄外造血を認めたとする報告もある³⁾。これらの病理学的特徴は腎細胞癌や血管肉腫と一部類似するが、核異形や血管内皮細胞の多層化、壊死巣などの悪性所見は認めない^{3,9)}。免疫組織化学染色では、CD31, CD34, vimentin, Factor VIII, ERG, FLI-1 が陽性であり、CD8, CD10, D2-40, HMB45, Melan-A, HHV8, S100 は陰性を示すことが知られている³⁾。自験例でも CD31, CD34, Factor VIII が陽性であり、血管肉腫の鑑別に用いられる D2-40 および腎細胞癌関連マーカー (RCC, CD10, PAX8, cytokeratin AE1/AE3) が陰性であったことから、過去の報告に合致する結果であった。

Anastomosing hemangioma は再発や転移、関連する死亡の報告はなく、良性疾患である。一方、これまで報告された腎発生例では、82例中48例で腎摘除術もしくは腎部分切除術などによる外科的摘除が行われていた (Table)。その理由として、前述の通り画像検査で不均一な造影効果を呈することからしばしば悪性腫瘍との鑑別が困難であることや、稀ではあるが自験例のように経時的に増大する可能性があることが考えられる。自験例においても、放射線科医師による診断で anastomosing hemangioma の可能性が指摘されていたが、経時的な増大傾向から悪性腫瘍を完全には否定できないこと、また患者が外科的摘除および病理学的診断を希望したことから、手術を選択した。O'Neill ACらによる32例の anastomosing hemangioma の後方視的検討では、8例で経皮的生検を実施し、うち7例で確定診断に至ったと報告されている¹⁸⁾。同報告では、生検を実施した8例において出血などの合併症を認めず、画像診断で anastomosing hemangioma が疑われた場合には生検によって手術が回避できる可能性がある、と結論付けている¹⁸⁾。一方で、前述の8例中1例では十分な組織量が採取できず、確定診断に至っていない

い。また、生検により anastomosing hemangioma の診断が得られてもその後に本症例のように増大傾向を示す可能性も考えられるため、定期的な画像検査によるフォローは必要である。生検後の経過観察中に腫瘍の増大や症状の出現を認めた場合には、症状コントロールや生検結果の不確実性を考慮して治療適応であると考えられる。本症例では術後2日と早期に退院できたことから、結果的にロボット支援手術によって低侵襲下に診断的治療を完結できたと言える。仮に血管肉腫などの悪性腫瘍であった場合には、生検による腫瘍細胞播種の可能性が懸念されるため、生検の適応については個々の症例に応じて慎重に判断する必要がある。

結 語

腎に発生した anastomosing hemangioma の1例を経験した。腎腫瘍の造影 CT および MRI 検査において、動脈相で辺縁が腎実質と同程度に増強され、静脈相では造影領域が辺縁から求心性に拡大する特徴的な所見を認めた場合には、anastomosing hemangioma と診断して経過観察を行うことが可能である。

文 献

- Hollingsworth JM, Miller DC, Daignault S, et al.: Rising incidence of small renal masses: a need to reassess treatment effect. *J Natl Cancer Inst* **20**; 98: 1331-1334, 2006
- Montgomery E and Epstein JI: Anastomosing hemangioma of the genitourinary tract: a lesion mimicking angiosarcoma. *Am J Surg Pathol* **33**: 1364-1369, 2009
- Lappa E and Darkos E: Anastomosing hemangioma: short review of a benign mimicker of angiosarcoma. *Arch Pathol Lab Med* **144**: 240-244, 2020
- Perdiki M, Datseri G, Liapis G, et al.: Anastomosing hemangioma: report of two renal cases and analysis of the literature. *Diagn Pathol* **12**: 14, 2017
- Burton KR, Jakate K, Pace KT, et al.: A case of recurrent, multifocal anastomosing hemangiomas. *BML Case Rep* 2017, 2017
- Al-Maghrabi HA and Al Rashed AS: Challenging pitfalls and mimickers in diagnosing anastomosing capillary hemangioma of the: kidney: case report and literature review. *Am J Case Rep* **18**: 255-262, 2017
- Silva MA, Fonseca EKUN, Yamauchi FI, et al.: Anastomosing hemangioma simulating renal cell carcinoma. *Int Braz J Urol* **43**: 987-989, 2017
- Abboudi H, Tschobotko B, Carr C, et al.: Bilateral renal anastomosing hemangioma: a tale of two kidneys. *J Endourol Case Rep* **3**: 176-178, 2017
- Cheon PM, Rebello R, Naqvi A, et al.: Anastomosing hemangioma of the kidney: radiologic and pathologic distinctions of a kidney cancer mimic. *Curr Oncol* **25**: 220-223, 2018
- Patel SR, Abimbola O, Bhamber T, et al.: Incidental finding of bilateral renal and adrenal anastomosing hemangioma: a rare case report. *Urol Case Rep* **27**: 100912, 2019
- Zheng LP, Shen WA, Wang CH, et al.: Anastomosing hemangioma arising from the left renal vein: a case report. *World J Chin Cases* **26**: 4986-4992, 2020
- Zhou J, Yang X, Zhou L, et al.: Anastomosing hemangioma incidentally found in kidney or adrenal gland: study of 10 cases and review of literature. *Urol J* **17**: 650-656, 2020
- Lo C and Cheng SY: Case report on anastomosing hemangioma: an unusual vascular tumor in kidney. *Case Rep Nephrol*: 8847998, 2021
- Kim CS, Choi SJN, Kim SS, et al.: An anastomosing hemangioma mimicking a renal cell carcinoma in a kidney transplant recipient: a case report. *BMC Nephrol* **22**: 262, 2021
- 隠岐雄太, 佐藤元考, 堀谷 弘, ほか: 副腎 Anastomosing hemangioma の1例. *泌尿紀要* **67**: 7-10, 2021
- 青島宏枝, 井坂珠子, 荻原 哲, ほか: 縦隔 Anastomosing hemangioma の1切除例. *気管支学* **42**: 358, 2020
- Zhang W, Wang Q, Liu YL, et al.: Anastomosing hemangioma arising from the kidney: a case of slow progression in four years and review of literature. *Int J Clin Exp Pathol* **8**: 2208-2213, 2015
- O' Neill AC, Craig JW, Silverman SG, et al.: Anastomosing hemangioma: locations of occurrence, imaging features, and diagnosis with percutaneous biopsy. *Abdom Radiol* **41**: 1325-1332, 2016

(Received on December 27, 2021)
(Accepted on April 1, 2022)