

副腎 Anastomosing hemangioma の 1 例

隠岐 雄太, 佐藤 元孝, 堀谷 弘
上田 倫央, 中山 治郎, 三宅 修
市立豊中病院泌尿器科

A CASE OF ADRENAL ANASTOMOSING HEMANGIOMA

Yuta OKI, Mototaka SATO, Hiromu HORITANI,
Norichika UEDA, Jiro NAKAYAMA and Osamu MIYAKE
The Department of Urology, Toyonaka Municipal Hospital

An 83-year-old man with left lower back pain was found to have a 5 cm mass in contact with the right adrenal gland and a 12 mm left ureteral stone by abdominal plain computed tomography. An abdominal plain magnetic resonance imaging T2-weighted image revealed a heterogeneous high signal mass in the right adrenal gland. Pheochromocytoma, adrenal carcinoma, and retroperitoneal neurogenic tumor were suspected. Tumor markers and endocrine examinations were within standard values. Laparoscopic right adrenalectomy was performed. A 4×3.6 cm, 62 g solid tumor was found in contact with right adrenal gland. Histopathologically, hobnail-like vascular endothelial cells were found in the tumor, but no malignant findings such as multi-layered vascular endothelial cells and nuclear atypia were observed. This tumor was diagnosed to be an anastomosing hemangioma.

(Hinyokika Kyo 67 : 7-10, 2021 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_67_1_7)

Key words : Anastomosing hemangioma, Adrenal tumor

緒 言

Anastomosing hemangioma は2009年に Montgomery と Epstein が初めて6例を報告した良性腫瘍である¹⁾. Tao らによると腎臓, 腎周囲脂肪, 肝臓, 卵巣, 小腸, 副腎などに発生すると報告されており, 腎臓, 腎周囲脂肪61.3%, 副腎3.2%と後腹膜領域でその多くを占める²⁾. 今回, われわれは4例目の報告となる副腎 anastomosing hemangioma の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する.

症 例

患 者 : 83歳, 男性

主 訴 : 左腰背部痛

既往歴 : 前立腺肥大症, 脂質異常症, 高血圧症

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 左腰背部痛を主訴に近医泌尿器科を受診した. 腹部単純 CT で5 cm 大の右副腎腫瘍と12 mm 大の左尿管結石を指摘された. MRI では, T2 強調像で褐色細胞腫, 副腎癌, 後腹膜神経原性腫瘍などが疑われたため, 精査加療目的で当科を紹介された.

現 症 : 身長 163 cm, 体重 72 kg, 血圧 122/58 mmHg, 脈拍52回/分.

血液・尿検査所見 : 末梢血液一般・生化学検査では異常を認めず, CEA, CA19-9, PSA, sIL-2R, NSE, proGRP などの腫瘍マーカーも正常範囲内であった.

内分泌検査においても, コルチゾール 7.7 µg/dl, ACTH 5.2 pg/ml, アドレナリン 0.04 ng/ml, ノルアドレナリン 0.36 ng/ml, ドーパミン ≤0.02 ng/ml, 尿中メタネフリン Cr 比 0.11 mg/g/Cr, 尿中ノルメタネフリン Cr 比 0.25 mg/g/Cr, アルドステロン 61 pg/ml, DHE-S 43 µg/dl, レニン活性 <0.2 ng/ml/hr, TSH 0.76 µIU/ml, FT4 0.92 ng/dl と正常範囲内であった.

画像検査所見 : 腹部単純 CT では右副腎に接する径 5 cm 大の腫瘍と 12 mm 大の左尿管結石, 左水腎症, 多発肝嚢胞を認めた (Fig. 1A, B). 腹部単純 MRI では T2 強調像で, 副腎腫瘍は内部不均一な高信号を呈し, 褐色細胞腫, 副腎癌, 後腹膜神経原性腫瘍などが疑われた (Fig. 2A, B). 内分泌検査では否定的であったが, 褐色細胞腫の可能性を完全には否定できず, 造影 CT は撮影しなかった.

入院後経過 : 右副腎腫瘍に対して腹腔鏡下右副腎摘除術を施行した. 経腹的側方到達法で腫瘍と右副腎を一塊に摘除した. 腫瘍と腎静脈などの周囲組織に著明な癒着がみられ, 剥離に難渋した. 手術時間は3時間12分, 出血量は305 ml で, 合併症なく経過し術後8日目に退院となった. 摘除標本は長径 4×3.6 cm, 重量 62 g で, 出血や変性を伴う境界明瞭な充実性腫瘍が副腎と接するように存在していた (Fig. 3).

病理組織診断 : 大小の血管が巣状に密に増生する領域が散見され, 血管内皮は hobnail 状を呈していた.



A



B

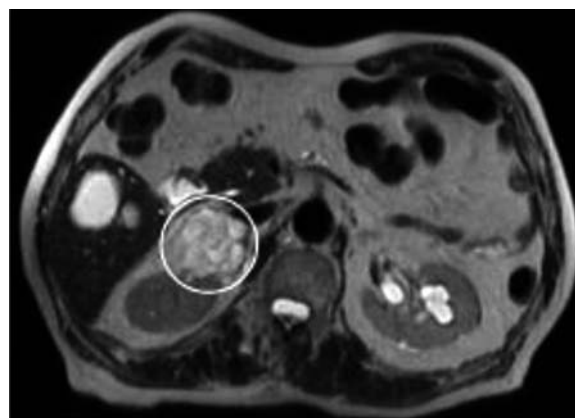
Fig. 1. Coronal images of abdominal plain CT revealed a mass 5 cm in diameter in contact with the right adrenal gland (a) and a 12 mm left ureteral stone (b).

核異型などの悪性所見は認められず anastomosing hemangioma の診断となった (Fig. 4A, B). 病理学的には腫瘍と副腎の連続性は見られなかった。

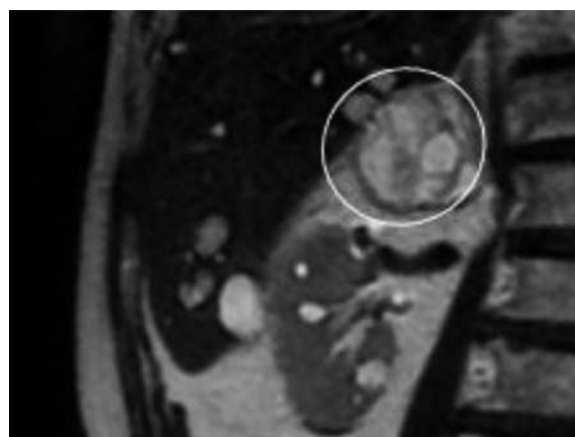
術後経過：術後1カ月に左尿管結石に対して、TULを施行した。右副腎腫瘍に関しては術後9カ月現在再発を認めていない。

考 察

Anastomosing hemangioma は、Perdiki ら³⁾によると約60%は無症状であると報告されている。他に血尿、側腹部痛、背部痛、排尿障害、神経学的欠損などの報告があるが、これらは腫瘍発生部位によると思われる。



A



B

Fig. 2. Axial (a) and coronal (b) images of T2-weighted abdominal plain MRI revealed a heterogeneous high signal mass in the right adrenal gland.

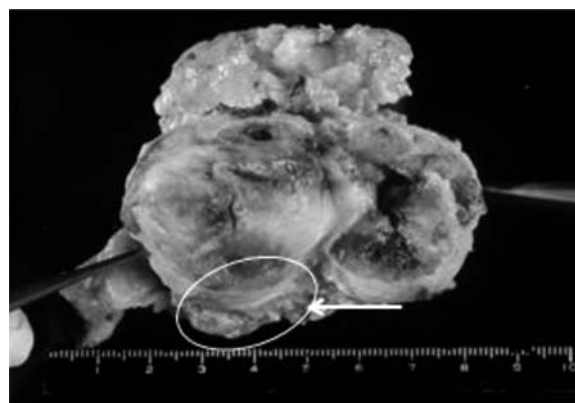


Fig. 3. 4×3.6 cm, 62 g solid tumor was present in contact with the right adrenal gland (circle and arrow).

る。自験例は左腰背部痛を主訴としていたが、これは左尿管結石によるもので腫瘍は偶発的に発見された。

画像所見については、超音波検査で腫瘍は低エコー⁴⁾、造影CT検査で辺縁から中心部への経時的な造影効果、MRI検査ではT2強調像で高信号を示す⁵⁾が、画像検査のみでの確定診断は困難とされてい

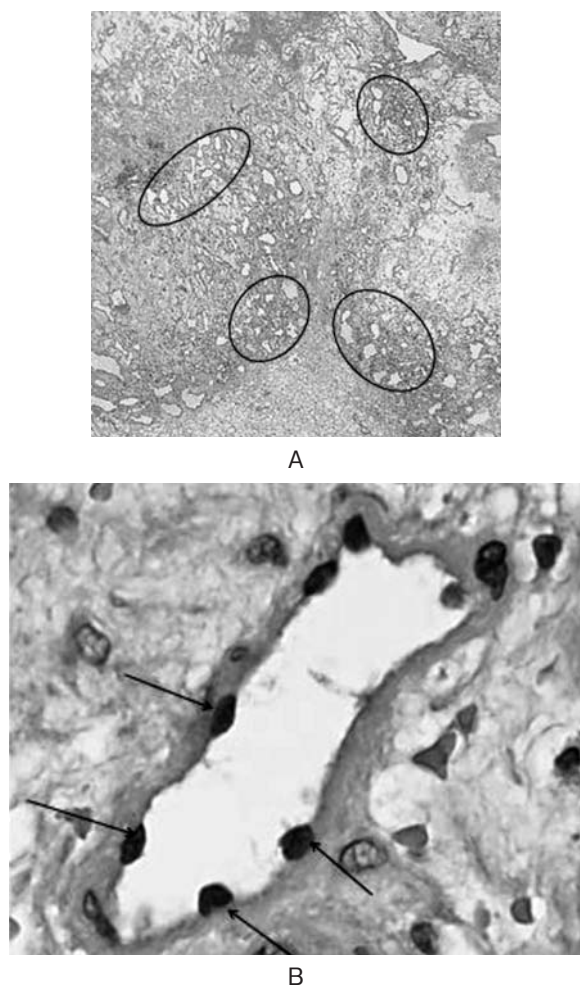


Fig. 4. Areas of focal and dense proliferation of blood vessels (a) and hobnail-like vascular endothelial cells (b) in the tumor.

る⁶⁾.

病理学的には anastomosing hemangioma は小葉構造の欠如, 局所的に血管へと伸展する浸潤様式, hobnail 状の血管内皮細胞, 硝子様小球, 巣状に密に増生する大小の血管といった血管肉腫と同様の特徴を示すが, 核異型, 血管内皮細胞の多層化, 壊死領域といった悪性の特徴を持たない点で血管肉腫とは異なる^{5,7)} (Table 1). 免疫組織染色では CD31, CD34, FLI1, Ki-67 などで検討されているが明確な鑑別は難しい⁷⁾.

血管性腫瘍の分類には ISSVA 分類が用いられ, 乳

児血管腫, 先天性血管腫, 房状血管腫といった良性腫瘍, カボジ肉腫様血管内皮腫, 網状血管内皮腫, カボジ肉腫といった境界型の腫瘍, 血管肉腫や類上皮血管内皮腫といった悪性腫瘍が含まれる⁸⁾. Anastomosing hemangioma は, 血管肉腫と類似する病理学的特徴を有する良性腫瘍として2009年に提唱された¹⁾.

腎臓, 副腎, 腎周囲脂肪組織といった後腹膜領域に発生した anastomosing hemangioma の報告例は自験例を含めて62例であった^{1-6,9-14)} (Table 2). 発生部位は腎臓56例, 副腎4例, 腎周囲脂肪4例と腎臓に多く認められた. 性別は男性43例, 女性18例と男性に多い傾向にあった. 左22例, 右20例と左右差はなく, 両側に発生した症例は6例であった. 年齢は10歳から83歳まで幅広く認められ, 平均年齢は50.4歳であった. なお自験例が最高齢であった. 主訴は無症状が34例で, 不明が14例, 血尿6例, 背部痛・側腹部痛8例で, 多くが偶発的に発見されていた. 腫瘍径は0.1~7 cm で, 平均は1.9 cm であった. 術後のフォローアップ期間は1~112カ月 (中央値12カ月) であり, 再発の報告はなかった.

副腎 anastomosing hemangioma の報告例は自験例を含めて4例であった⁹⁻¹¹⁾. 自験例以外の症例報告には病理学的な腫瘍と副腎との連続性について記載されていなかった. 腎周囲脂肪からの発生である可能性も考えられるが, 画像上副腎に接する腫瘍であり, 副腎腫瘍と診断され, 全例副腎摘除がなされている.

内分泌非活性で偶然発見された副腎腫瘍に関しては, 4 cm 以上の副腎腫瘍や画像所見で悪性が疑われる副腎腫瘍は摘除することが推奨されている¹⁵⁾. 自験例は5 cm で, 画像上も悪性の可能性が否定できなかったため摘除を行ったが, 腫瘍は副腎を含め周囲組織と強固に癒着しており副腎温存は困難であった. 副腎 anastomosing hemangioma は良性腫瘍だが術前診断は困難なため, 4 cm 以上または画像上悪性の可能性を否定できなければ, 摘除せざるを得ないと思われる.

結 語

副腎 anastomosing hemangioma の1例を経験した.

Table 1. Pathological findings in hemangioma, anastomosing hemangioma, and angiosarcoma

	Hemangioma	Anastomosing hemangioma	Angiosarcoma
血管内皮の血管肉腫様変化 小葉構造の欠如 Hobnail 硝子様小球 局所的に血管へと伸展する浸潤様式	なし	あり	
悪性所見の有無 核異型 血管内皮細胞の多層化 壊死領域		なし	あり

Table 2. Summary of 62 anastomosing hemangiomas in the retroperitoneal area

発生部位	腎臓	56例
	副腎	4例
	腎周囲脂肪組織	4例
性別	男	43例
	女	18例
	不明	1例
左右	左	22例
	右	20例
	両側	6例
	不明	14例
年齢	10-83歳 (平均 50.4歳)	
主訴	なし	34例
	不明	14例
	血尿	6例
	背部痛・側腹部痛	8例
腫瘍径	0.1-7.0 cm (平均 1.9 cm)	
治療	手術	62例
フォローアップ期間	1-112カ月 (中央値 12カ月)	
再発	なし	62例
	あり	0例

Anastomosing hemangioma は、術前の確定診断は困難で術後に病理組織から診断されるが、再発の報告はなく、自験例でも術後9カ月間再発は認めていない。

本論文の要旨は第243回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- Montgomery E and Epstein JI : Anastomosing hemangioma of the genitourinary tract. *Am J Surg Pathol* **33** : 1364-1369, 2009
- Tao LL, Dai Y, Yin W, et al. : A case report of a renal anastomosing hemangioma and a literature review : an unusual variant histologically mimicking angiosarcoma. *Diagn Pathol* **9** : 159, 2014
- 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
- Kuroda N, Ohe C, Deepika S, et al. : Review of renal anastomosing hemangioma with focus on clinical and pathological aspects. *Pol J Pathol* **67** : 97-101, 2016
- 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** : e220-223, 2018
- O'Neill AC, Craig JW, Silverman SG, et al. : Anastomosing hemangiomas : locations of occurrence, imaging features, and diagnosis with percutaneous biopsy. *Abdom Radiol (NY)* **41** : 1325-1332, 2016
- Lappa E and Drakos E : Anastomosing hemangioma : short review of a benign mimicker of angiosarcoma. *Arch Pathol Lab Med* **144** : 240-244, 2020
- Wassef M, Blei F, Adams D, et al. : Vascular anomalies classification : recommendations from the international society for the study of vascular anomalies. *Pediatrics* **136** : e203-214, 2015
- Patel SR, Abimbola O, Bhambher T, et al. : Incidental finding of bilateral renal and adrenal anastomosing hemangiomas : a rare case report. *Urol Case Rep* **27** : 100912, 2019
- Burton KR, Jakate K, Pace KT, et al. : A case of recurrent, multifocal anastomosing haemangiomas. *BMJ Case Rep* 2017, 2017
- Ross M, Polcari A, Picken M, et al. : Anastomosing hemangioma arising from the adrenal gland. *Urology* **80** : e27-28, 2012
- 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
- Omiyale AO : Anastomosing hemangioma of the kidney : a literature review of a rare morphological variant of hemangioma. *Ann Transl Med* **3** : 151, 2015
- Edwards JP, Stuart HC, Urbanski SJ, et al. : A rare cavernous hemangioma of the adrenal gland. *Int J Surg Case Rep* **5** : 52-55, 2014
- Berland LL, Silverman SG, Gore RM, et al. : Managing incidental findings on abdominal CT : white paper of the ACR incidental findings committee. *J Am Coll Radiol* **7** : 754-773, 2010

(Received on June 1, 2020)
(Accepted on September 29, 2020)