

脂肪肉腫との鑑別が困難であった後腹膜海綿状血管腫の1例

藤本 幸太¹, 大島 純平¹, 片山 欽三¹

鄭 則秀¹, 原田 泰規¹, 西村 健作¹

清川 博貴², 児玉 良典³, 真能 正幸²

¹独立行政法人国立病院機構大阪医療センター泌尿器科

²独立行政法人国立病院機構大阪医療センター病理診断科

³京都府立医科大学大学院医学研究科分子病態病理学

A CASE OF RETROPERITONEAL CAVERNOUS HEMANGIOMA DIFFICULT TO DIFFERENTIATE FROM RETROPERITONEAL LIPOSARCOMA

Kota FUJIMOTO¹, Jumpei OSHIMA¹, Kinzo KATAYMA¹,
Norihide TEI¹, Yasunori HARADA¹, Kensaku NISHIMURA¹,
Hiroki KIYOKAWA², Yoshinori KODAMA³ and Masayuki MANO²

¹The Departments of Urology, National Hospital Organization Osaka National Hospital

²The Departments of Pathology, National Hospital Organization Osaka National Hospital

³The Departments of Pathology and Applied Neurobiology, Kyoto Prefectural University of Medicine

We report a case of retroperitoneal cavernous hemangioma. A 77-year-old woman complaining of nausea was admitted to a different hospital in September 2013. Computed tomography (CT) detected a retroperitoneal mass in the left pararenal space. Three years later, repeated CT showed that the tumor had gradually grown in size. On dynamic contrast-enhanced magnetic resonance imaging (MRI), the tumor demonstrated radiographic signs of a liposarcoma. Resection of the mass with left nephrectomy was performed in June 2016, and histopathology showed cavernous hemangioma. Clinical diagnosis of cavernous hemangioma is difficult, and imaging modalities, including CT and MRI, may not be conclusive. The final diagnosis in most cases is established through surgery. This is the 29th case of retroperitoneal cavernous hemangioma to be reported in Japan.

(Hinyokika Kiyo 63 : 521-524, 2017 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_63_12_521)

Key words : Retroperitoneal tumor, Cavernous hemangioma

緒 言

血管腫は非上皮性良性腫瘍であり、肝臓、脳幹部、皮膚などに高頻度で見られる腫瘍である。後腹膜に発生することは比較的稀で、今回、われわれは脂肪肉腫との鑑別が困難であった後腹膜海綿状血管腫の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 : 77歳, 女性

主 訴 : なし

既往歴 : 関節リウマチ, 骨粗鬆症, 高血圧, 脂質異常症

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2013年9月に嘔気を認めたため近医受診し, 原因精査目的に施行した腹部CTで左腎外側に2.8×2.2 cm大の腫瘤性病変を指摘された。2016年1月に3.9×2.6 cm大と増大を認めたため, 手術加療目的に当科紹介受診となった。

来院時現症および理学的所見 : 身長 149.3 cm, 体重 49.3 kg (BMI 22.1), 血圧 128/78 mmHg, 脈拍 70 bpm, 体温 36.6°C, 腹部平坦軟, 圧痛なし

検査所見 : WBC 5,300/ μ l, RBC 330×10^4 / μ l, Hb

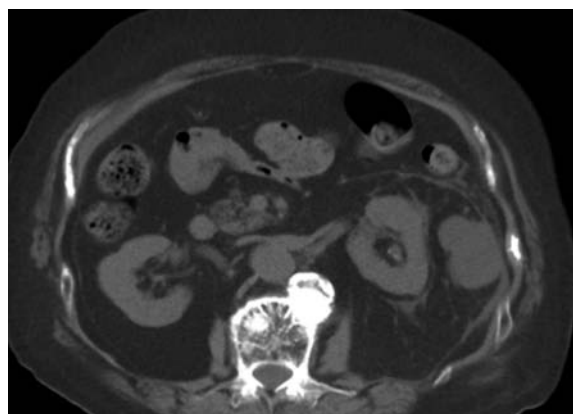


Fig. 1. Plain computed tomography showed a soft-tissue mass in the left pararenal space with perinephric inflammatory changes.

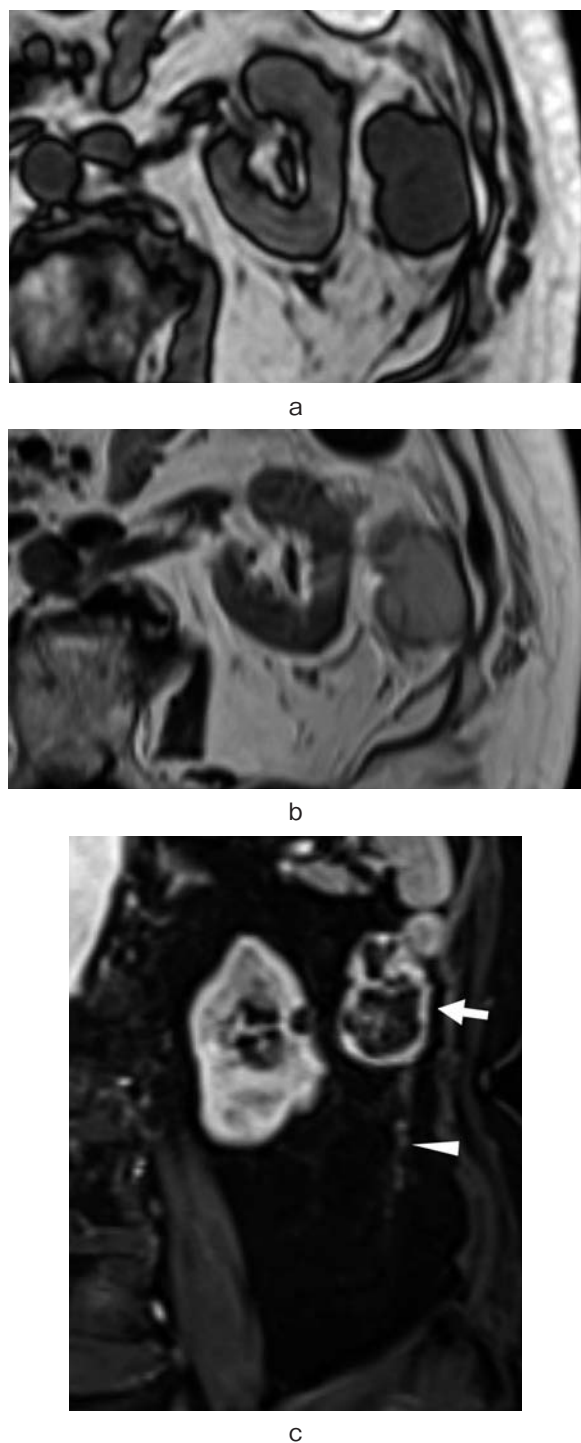


Fig. 2. a) On T1-weighted magnetic resonance imaging (MRI), the tumor was hypointense relative to muscle. b) On T2-weighted MRI, the tumor was slightly hyperintense relative to muscle. c) Enhanced T1-weighted MRI showed gradual reticular enhancement and thickened fibrous septa within the lesion (arrow). Linear regions of high signal intensity with enhancement can be seen in the left perinephric space (arrowhead).

10.8 g/dl, Ht 32.6%, Plt $33.1 \times 10^4/\mu\text{l}$, Na 139 mEq/l, K 5.0 mEq/l, AST 41 U/l, ALT 33 U/l, LDH 251 U/l, T-bil 0.9 mg/dl, BUN 12 mg/dl, Cre 0.84 mg/dl, CRP 0.35 mg/dl, CEA 3.9 ng/ml, AFP 4.0 ng/ml, CA19-9 11 U/ml と軽度肝機能異常を認める以外は異常を認めなかった。尿沈渣は赤血球 1~4/HPF, 白血球 0~1/HPF であった。

画像所見：腹部単純 CT では左腎外側に 3.9×2.2 cm 大の充実性腫瘤を認め、腎周囲脂肪組織の濃度上昇を認めた (Fig. 1)。腹部造影 MRI では T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号、拡散強調像で軽度高信号を示した。不整形で不均一に造影され、内部に隔壁構造を認めた。腎周囲の脂肪組織内に一部造影される索状構造を認めた (Fig. 2a~c)。PET-CT では SUVmax 2.4 と軽度 FDG 集積を認めた。その他転移を疑う異常集積は認めなかった。

以上より後腹膜脂肪肉腫と診断し全身麻酔下に腫瘍摘除術および左腎合併切除術を施行した。

手術所見：shevron 切開をおき経腹膜的に腫瘍および左腎に到達した。腫瘍は弾性硬で脾臓、膵臓との癒着を認めた。腎周囲脂肪は硬く、腫瘍と左腎との境界は不明瞭であった。鋭的鈍的に剥離を行い、腫瘍を左腎、腎周囲脂肪と一塊に摘出した。手術時間は 4 時間 23 分、出血量は 920 ml であった。

病理組織所見：大小不同の拡張した一部に赤血球を入れる管腔様構造物の増生を認めた。管腔は異型性に乏しい一層の扁平な細胞で覆われており、海綿状、網状に増殖していた (Fig. 3)。免疫染色では CD31, CD34 が陽性で、脂肪肉腫で陽性となる CDK4, MDM2 は陰性であった。

以上より海綿状血管腫と診断した。

考 察

後腹膜腫瘍は約 80% が悪性とされ、良性腫瘍は奇形

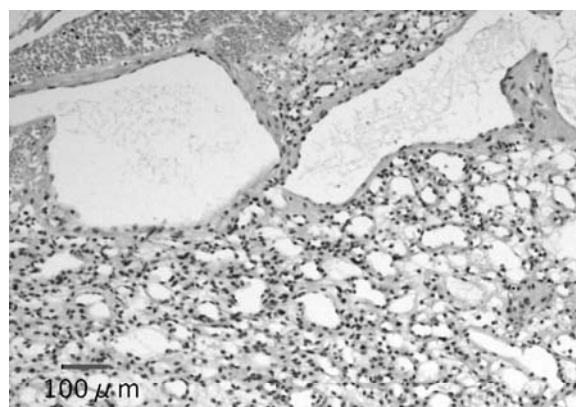


Fig. 3. Histopathology showed cavernous hemangioma with multiple vascular spaces of various sizes, lined by a single layer of flattened cells.

腫や囊腫が多く、血管腫は後腹膜腫瘍の1～3%であるとされる¹⁾。遠藤らは血管腫を病理学的に毛細血管性血管腫、海綿状血管腫、静脈性血管腫、血管周囲細胞腫、血管内皮細胞腫の5型に分類している²⁾。海綿状血管腫は一層の内皮細胞で囲まれた拡張した管腔が不規則な蛇行を示し、内部に血液を充満するものとされる。

後腹膜血管腫は1983～2015年まで検索した結果、自験例を含め本邦29例の報告があった。年齢分布は4カ月～77歳で中央値は53歳であった。自験例は77歳で最も高齢であった。腫瘍径は3～23 cmで中央値9.3 cmであった。性差、左右差に明らかな差はなかった。主訴は無症状が12例と最も多く、腹部膨満感6例、側腹部痛3例であった。

後腹膜血管腫は他の部位の血管腫が画像所見で多血性を示すのと異なり、乏血性であることが多い。このことは無症状で偶発的に発見されることが多いことと関連しているとされる³⁾。また後腹膜血管腫のCT・MRI所見に特徴的なものはなく、術前に血管腫と確定診断するのは困難とされる。血管造影におけるcotton-wool appearanceが特徴的とされるが、典型像は呈する症例は稀である。さらに腫瘍の増大に伴う内部の器質化が診断をより難しくするとされている⁴⁾。本邦報告例の画像所見では造影CTにおける造影効果やMRIにおける信号強度も多様であった (Table 1)。

自験例では2.8～3.9 cmと腫瘍の増大は緩徐ではあったが、MRIで腫瘍は不均一に造影され、内部に隔壁構造を認め、周囲の脂肪織に造影される索状構造を認めたことなど脂肪肉腫の画像所見と一致していた。またMRI拡散強調像やPET-CT所見から後腹膜脂肪肉腫を第一に疑った。腫瘍散布の可能性を考慮し、針生検は施行しなかった。局所再発を防ぐため十分な切除断端距離を確保した手術が必要と判断し、後

腹膜腫瘍切除術および左腎合併切除術を施行した。

後腹膜血管腫は術前診断が困難で、病理組織所見にて最終的に確定診断に至る場合が多い。本邦報告例における術前診断は後腹膜悪性腫瘍が19例と最も多く、その他脾嚢胞性腫瘍2例、副腎腫瘍1例、卵巣癌1例、卵巣嚢腫1例であった。

術前に後腹膜血管腫と診断しえた症例は5例のみであった。血管造影にて肝血管腫に特徴的なcotton-wool appearanceを認めた2例^{5,6)}、他臓器にも多発して血管腫が伴っておりすでに診断されていた2例^{7,8)}とKasabach-Merritt症候群を併発しDICを発症した1例⁹⁾であった。

後腹膜血管腫には特徴的な画像所見がないため悪性腫瘍の鑑別が困難であることやDICや破裂などの重篤な合併症に至った報告例^{9,10)}もあることから外科的手術が第一選択になるものと考えられた。

結 語

脂肪肉腫との鑑別が困難であった後腹膜海綿状血管腫の1例を経験した。

本論文の要旨は第233回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Brasch JW and Mon AB: Primary retroperitoneal tumors. Surg Clin North Am **47**: 663-678, 1967
- 2) 遠藤 健, 豊島 宏, 武村民子, ほか: 急性腹症を呈した巨大後腹膜血管腫の1例. 臨外 **37**: 1583-1587, 1982
- 3) 西村 健, 門脇嘉彦, 石堂展宏, ほか: 後腹膜腔に発生し診断に苦慮した海綿状血管腫の1例. 日臨外会誌 **74**: 3486-3490, 2013
- 4) 村上 純, 青山圭一, 折原正周, ほか: 後腹膜腔に発生した海綿状血管腫の1例. 腹部画像診断 **15**: 811-818, 1995
- 5) 高羽夏樹, 細見昌弘, 佐藤健司, ほか: 後腹膜海綿状血管腫の1例. 泌尿紀要 **37**: 725-728, 1991
- 6) Kinoshita H, Uesaka K, Nakai M, et al.: Retroperitoneal cavernous hemangioma. Wakayama Med Rep **47**: 29-31, 2007
- 7) 米沢俊一, 寺井健二, 遠藤 薫, ほか: 後腹膜巨大海綿状血管腫を伴ったBlue Rubber Bleb Nevus症候群の1例. 小児臨 **41**: 1272-1276, 1988
- 8) 渡野辺郁雄, 中野一永, 須田耕一, ほか: 多発血管腫を伴った後腹膜血管腫の1例. 日臨外会誌 **62**: 2530-2534, 2001
- 9) 谷口雅彦, 上田祐滋, 前田守孝, ほか: Kasabach-Merritt症候群を呈した後腹膜原発海綿状血管腫の1手術例. 日臨外会誌 **56**: 1459-1463, 1995
- 10) 黒崎 功, 皆川昌弘, 飯合恒夫, ほか: 手術手技巨大後腹膜血管腫破裂例に対する肝右葉切除を併

Table 1. Characteristics of 29 patients treated with tumor resection for retroperitoneal hemangioma

【年齢】	4 カ月-77歳（中央値53歳）		
【性別】	男	14例	女 15例
【患側】	左	17例	右 12例
【主訴】	なし	12例	
	腹部膨満感	8 例	
	側腹部痛	3 例	
	その他	6 例	
【腫瘍径】	3-23 cm（中央値 9.3 cm）		
【造影 CT】	内部不均一に造影		6 例
	辺縁のみ造影		5 例
	造影効果なし		5 例
【単純 MRI】	T2；高信号，T1；低信号		6 例
	T2；不均一な信号が混在		4 例
	その他		4 例

施した緊急腫瘍摘出術：類洞型海綿状血管腫
(Sinusoidal hemangioma) の 1 例. 手術 **62** : 1317-
1322, 2008

(Received on March 2, 2017)
(Accepted on August 23, 2017)