

膀胱血管腫の1例

筑波大学臨床医学系泌尿器科（主任：北川龍一教授）

内田克紀・矢崎恒忠

梅山知一・菅谷公男

根本真一・高橋茂喜

小川由英・加納勝利

北川龍一

A CASE OF BLADDER HEMANGIOMA

Katsunori UCHIDA, Tsunetada YAZAKI, Tomokazu UMEYAMA,

Kimio SUGAYA, Shinichi NEMOTO, Shigeki TAKAHASHI,

Yoshihide OGAWA, Shori KANO and Ryuichi KITAGAWA

*From the Department of Urology, Institute of Clinical Medicine, the University of Tsukuba**(Director: Prof. R. Kitagawa)*

A case of bladder hemangioma treated with partial cystectomy is reported. A 20-year-old male was admitted with the chief complaint of gross hematuria. Physical examination was non-remarkable. Cystoscopy revealed a bluish-red, sessile tumor about the size of a hen's egg at the left inferolateral bladder wall. Excretory urography showed the small filling defect at the left bladder floor. Computed tomography confirmed that the tumor had invaded deep into the muscle layer of the bladder wall. Selective iliac arteriography revealed arterial dilatation and a corkscrew-like appearance at the left inferior vesical artery compatible with the findings of benign neoplasm. With the preoperative diagnosis of bladder hemangioma extending deep into the muscle layer made, partial cystectomy was performed. Histological examination confirmed the preoperative diagnosis.

In selecting the appropriate mode of treatment we have emphasized the importance of determining at the preoperative work-up the degree of extension of the bladder hemangioma. In our case computed tomography was useful for this purpose.

We suggest that partial cystectomy should be the preferred choice when the patient is preoperatively confirmed to have a high-stage hemangioma, whereas transurethral resection may suffice when the hemangioma is confirmed to be at a low stage. Fatal bleeders could be controlled by open surgery even if the hemangioma extends beyond the bladder wall.

The pertinent literature is also reviewed and the characteristics of the bladder hemangioma are described.

Key words: Bladder hemangioma, Bladder tumor, Hematuria, Partial cystectomy

緒言

膀胱血管腫は比較的稀な疾患であり本邦では現在までに約50例が報告されている。本疾患において問題と

なるのは術前診断および治療方法であると考えられる。われわれは本疾患の1例を経験したのでここに報告するとともに若干の文献的考察を加える。

症 例

患 者：K.Y., 20歳, 男性.

初 診：1981年6月15日.

主 訴：排尿終末時血尿.

家族歴：特記すべきことなし.

既往歴：1973年, 血尿, 蛋白尿にて他大学病院を受診し, 特発性腎出血と診断された.

現病歴：1981年6月初旬, 数日間にわたり排尿終末時血尿が出現したため本院を受診した.

入院時現症：体格および栄養状態良好. 眼瞼結膜に貧血, 眼球結膜に黄疸を認めず. 皮膚粘膜に血管腫を認めず. 外陰部に異常所見は認められなかった.

入院時検査成績

血液一般

RBC $525 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 16.2 g/dl, Ht 48.1%,
WBC $6500/\text{mm}^3$, 血小板 $261 \times 10^3/\text{mm}^3$.

血液化学

総タンパク 7.5 g/dl, アルブミン 4.7 g/dl, Cr 1.0 mg/dl, BUN 15.7 mg/dl, Bil 0.5 mg/dl, GOT 16 U, GPT 6 U, LDH 200 U, AL-P 5.4 U, TTT 1.0 U, ZTT 2.8 U, Na 141 mEq/L, K 4.8 mEq/L, Cl 102 mEq/L, CRP (—), ESR 1 mm/hr.

尿 所 見

尿一般：糖 (—), 蛋白 (—), 円柱 (—).

尿沈渣：RBC 1~5/HPF, WBC 1~5/HPF.

尿培養：陰性.

尿細胞診：Class I

ECG : 異常所見なし

胸部X線：異常所見なし

膀胱鏡所見：膀胱左側壁に一部暗赤色を呈した鶏卵大の隆起性腫瘤が認められた. 腫瘤周囲粘膜および左右尿管口は正常であった. 以上より膀胱血管腫が強く疑われた.

排泄性腎盂造影所見 (IVP)：上部尿路に異常所見は認められなかったが, 膀胱頸部左側にやや表面不整の陰影欠損像が認められた (Fig. 1).

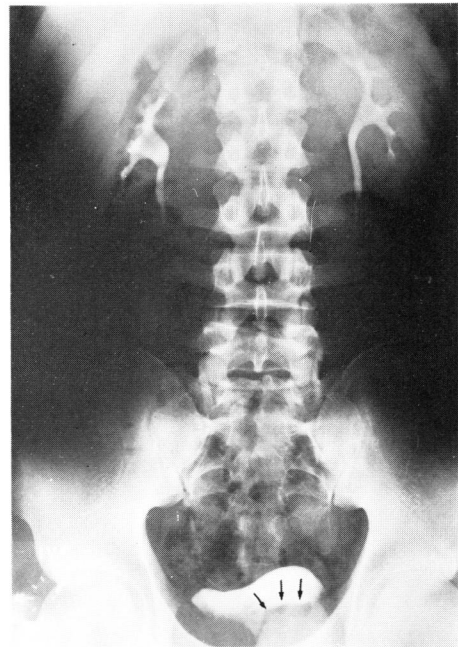


Fig. 1. Preoperative IVP showed a small filling defect at the left bladder floor.

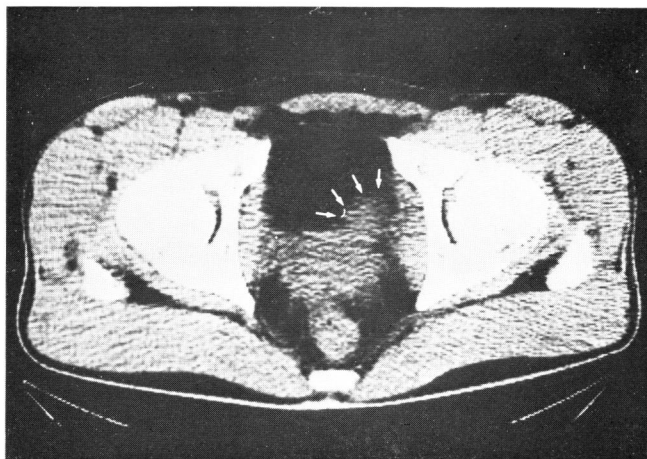


Fig. 2. CT scan revealed the tumor invading deep into the muscle layer of the posterolateral bladder wall.

経尿道的超音波断層撮影：膀胱頸部に近い左側壁に粘膜下におよぶ充実性の腫瘍が認められた。

CT scan：膀胱左壁後方から内腔に突出し、筋層におよぶ隆起性病変が認められた (Fig. 2)。

骨盤動脈造影：左下膀胱動脈に一致して血管は拡張およびコイル状変化が認められたが、膀胱外には異常血管像は認められなかった (Fig. 3)。膀胱壁内を中心とし、膀胱頸部に限局した良性腫瘍が疑われた。

術前諸検査の結果膀胱左側壁に発生した膀胱血管腫

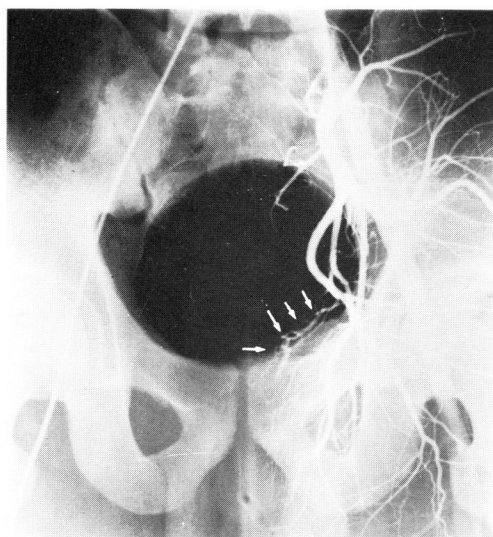


Fig. 3. Selective iliac arteriography showed arterial dilatation and corkscrew-like appearance at the left inferior vesical artery.

との診断のもとに8月11日膀胱部分切除術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開にて膀胱に達し膀胱を開くと左尿管口外側方の膀胱側壁に粘膜を通して青暗赤色を呈した鶏卵大の広基性腫瘍が認められた (Fig. 4)。術前検査により予想されたごとく膀胱周囲組織への浸潤は認められなかったので周囲は正常部を含めて腫瘍を切除した。摘出標本は $5 \times 3 \times 2$ cm で重量は 16 g であった (Fig. 5A)。

組織学的所見：腫瘍組織は一層の扁平上皮細胞に覆われ、著明に拡大した多数の管腔の集合により形成され、管腔内には多数の赤血球が認められた。間質には細胞浸潤は認められなかった。腫瘍組織は筋層にまでおよんでいたが悪性像は認められず、海綿状血管腫と診断された (Fig. 5B)。

経過：患者は術後経過良好で、尿所見も正常化したため8月31日退院した。現在経過観察中であるが、再発の徴は認められない。

考 察

膀胱血管腫は比較的稀な疾患であり、現在までに100例以上が報告されている。本邦においては1919年阿久津¹⁾の報告が第1例とされており1976年牛山ら²⁾が本邦報告例40例を集計しているが、その後の報告例9例および自験例1例を加えると計50例になると思われる。われわれは本邦報告50例を集計し欧米における報告例と比較検討したので以下その結果を述べる。

発生頻度

Melicow³⁾ によれば原発性膀胱腫瘍954例中非上皮

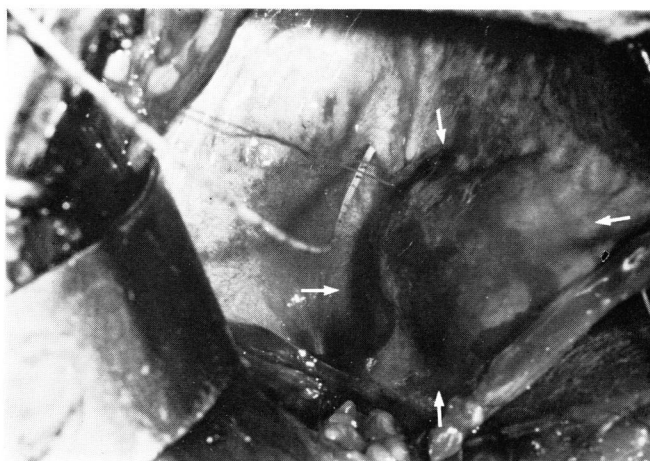


Fig. 4. Intraoperative finding. The hemangioma is shown on the posterolateral wall. A ureteral catheter is placed in the left ureter.



Fig. 5 A. Resected specimen (5 × 3 × 2 cm, 16 g)

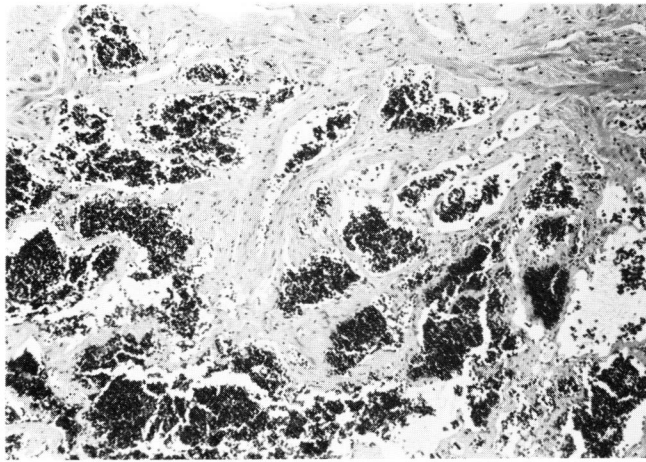


Fig. 5 B. Histology revealed the characteristic findings of cavernous hemangioma (H & E stain, reduced from ×80).

性腫瘍は40例(4.2%)であり、そのうち血管腫は6例(0.6%)であったと述べている。Campbell⁴⁾によると非上皮性良性膀胱腫瘍196例中血管腫は51例(26%)でありこれは非上皮性腫瘍のなかでは筋腫につぐ頻度である。本邦においては牛山らの報告によれば良性膀胱腫瘍40例中14例(35%)が血管腫であった。以上より原発性膀胱腫瘍における膀胱血管腫の頻度は比較的稀なようであるが膀胱良性腫瘍のなかでは頻度の高い腫瘍のひとつであると考えられる。

性差および年齢分布

Table 1 に示したごとく本邦においては男女比は3:2でやや男性に多い傾向がうかがわれる。

年齢に関して欧米では Fuleihan ら⁵⁾は62%が15歳以下に認められたとしており、Hendry ら⁶⁾は69人中31例で20歳までに治療を受けていると報告している。本邦報告例では20歳未満は28%、30歳未満は48%では半数が30歳未満で発生しているといえる。欧米報告

Table 1. 性別および年齢分布(本邦報告例)

年 令	男 性	女 性	合 計 (%)
0 ~ 9	2	5	7 (14)
10 ~ 19	3	4	7 (14)
20 ~ 29	5	5	10 (20)
30 ~ 39	3	2	5 (10)
40 ~ 49	2	2	4 (8)
50 ~ 59	6	0	6 (12)
60 ~ 69	4	1	5 (10)
70 ~ 79	2	1	3 (6)
80 ~	1	0	1 (2)
不 明	不 明	不 明	2 (4)
合 計 (%)	28 (56)	20 (40)	50 (100)

例と比較すると発症年齢はやや遅れているようである。しかし一般的には本疾患は各年齢層に発症しうるものでありとくに比較的若年層に好発する傾向が認められた。膀胱血管腫は元来先天的な疾患であるとされ

ていることにより若年者に好発することは容易に理解できうる。しかし高齢者にも発生するということは、腫瘍が良性であり進行が緩徐であるためかとも考えられるが、本疾患の長期にわたる経過観察はきわめて困難であるため、推測の域を出ない。

他臓器との合併に関して

Sturge Weber 症候群や von Hippel Lindau 病で知られているように血管腫は異なった臓器に発生することがある。本邦においては膀胱血管腫と他臓器の血管腫の合併は報告されていないが欧米では Stanley⁷⁾ が膀胱血管腫の20%は皮膚血管腫と関係あると報告している。Hendry⁶⁾ は膀胱血管腫を有する患者の31%で体表上の血管腫を有すると報告している。

発生部位

われわれは本邦報告50症例中部位不明の9症例を除く41症例において膀胱血管腫の発生部位を検討した (Table 2)。Table 2 のごとく血管腫は膀胱内のいかなる部位にも発生しうが、上皮性膀胱腫瘍が膀胱三角部を中心とした部位に好発するのに対し血管腫は膀胱頸部を中心として正中線上に発生する頻度が高くなっている。なお、ほとんどの症例は単発性であったが、多発症例が3例報告されており、うち1例は米粒大のものが7~8コ存在したというものもある。

Table 2. 膀胱血管腫発生部位 (本邦報告例)

発 生 部 位	発 生 数 (%)
前 壁	7 (17)
頸 部 (内尿道口を含む)	3 (7.3)
三角部	3 (7.3)
尿 管 口 付 近	10 (24.4)
頂 部	14 (34.1)
後 壁	9 (22.0)
側 壁	2 (4.9)
不 明	9 症例

多発症例は3症例に認められた。

主 訴

Table 3 に示すごとく血尿を主訴とする症例が90%で最も多く、その他の症状としては膀胱刺激症状などの腫瘍そのものによる物理的な病態によって生じたものが主であった。

診 断

膀胱鏡：膀胱鏡を通して観察すると血管腫は特徴的な所見を呈する。すなわち膀胱周囲の粘膜は正常であり境界明瞭な青暗赤色の腫瘍として認められる。性状は隆起性のものや有茎性のものなどがあり、大きさは

Table 3. 膀胱血管腫の主訴 (本邦報告例)

主 訴	例 数 (49例中の頻度)
血 尿	44 (90.0%)
頻 尿	7 (14.3%)
排 尿 痛	6 (12.2%)
排 尿 困 難	4 (8.2%)
尿 失 禁	3 (6.1%)
尿 閉	2 (4.1%)
そ の 他	3 (6.0%)

米粒大から手拵大までさまざまである。

IVP・膀胱造影：多くの血管腫はさほど大きくないためにこれらの検査方法はあまり価値がないと思われる。Hendry ら⁶⁾ はこれらの検査をおこなった症例の50%では正常所見であったと報告している。われわれの症例では血管腫が陰影欠損としてはっきり認められた。

血管造影：血管の蛇行・拡張・early venous return などが造影所見として認められると言われているがどれも血管腫に特徴的な所見ではない。しかし膀胱鏡検査と血管造影の結果より腫瘍の大きさ、部位、膀胱周囲への浸潤の程度などが判定できうるために術式を選択する上には有効な情報源となる。

CT scan：本法も血管造影と同様に診断の手段としてよりも非侵襲的に腫瘍の浸潤度を決定するための価値がより高い。われわれの症例においても血管腫の浸潤度決定には有効な検査法であった。

組織学的診断：術前における経尿道的生検は確実な浸潤度決定がなされていない場合には思いがけない大量出血につながることもある。Hamsher⁸⁾ らは生検により出血死にいたった症例を報告している。血管腫が疑われた場合は膀胱切開のもとに生検をおこない迅速診断にひきつづいて膀胱部分切除術を施行することがすすめられる。鑑別診断としては endometriosis, melanoma, hemangiosarcoma などの疾患があるがそれらの頻度はきわめて低く、術前に鑑別診断することは難しい。

治 療

本邦においては、膀胱部分切除術が72%を占めその他腫瘍切除術、切開凝固術、TUR, TUC あるいは放射線療法などがおこなわれている (Table 4)。いっぽう欧米においても部分切除術あるいは亜全摘術が最も多くおこなわれている治療方法であり、また多くの著者により最良の方法であると指摘されている^{6,9-11)}。膀胱血管腫は良性腫瘍であり腫瘍を完全に切除しさえすれば再発の危険はないが、不完全な切除であれば腫

Table 4. 膀胱血管腫の治療法（本邦報告例）

治療方法	件数
膀胱部分切除術 (尿管再吻合の2例を含む)	31
腫瘍切除術	4
切開凝固術	4
TUR	3
TUC	2
ラジウム針植込み術	1
放置	1
不明	7

瘍は再発する可能性がある。血管腫は膀胱鏡検査では小さく見えても筋層あるいは膀胱周囲組織へ深く浸潤している場合があり、Hendry ら⁶⁾は64%の症例が筋層にまで達していたと報告している。このような場合に経尿道的治療方法をおこなうと、とり返しのつかないような大出血を生ずる危険性が高い。以上により大出血の危険性を最小限にし、かつ腫瘍を完全に摘除するためには膀胱部分切除術が最も確実であり安全な方法であるといえよう。しかし血管造影や CT scan の発達により腫瘍の浸潤度を決定する技術が向上してきている現在、筋層への浸潤が高度でないものだけに限り TUR または TUC など考慮すべき治療方法であろう。

本邦における放射線治療に関しては原口ら¹²⁾が1950年に腫瘍切除後ラジウム針を植えこんだ報告が1例あるのみである。

欧米では Liang¹³⁾ が2症例に対して総計 2,500 rad を分割照射し良い結果を得ており、Klein¹¹⁾ は多発性血管腫、血管腫が三角部、頸部、尿管口を含んだ場合などの治療方法として放射線療法をすすめている。

結 語

肉眼的血尿を主訴とし膀胱部分切除術を施行した膀胱海綿状血管腫の1症例を報告し、あわせて若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は第406回日本泌尿器科学会東京地方会（1981年12月3日）において発表した。

文 献

- 1) 阿久津三郎：興味ある膀胱出血の2例。皮泌会誌 19: 66, 1919
- 2) 牛山武久，堀内誠三，三浦栞也，中川完三，親松常男，中島幹夫，土屋文雄：膀胱良性腫瘍（非上皮性）の3例。臨泌 29: 43~47, 1975
- 3) Melicow MM: Tumors of the urinary bladder. J Urol 74: 498~521, 1955
- 4) Campbell EW and Gislason J: Benign mesothelial tumors of the urinary bladder. J Urol 70: 733~742, 1953
- 5) Fuleihan FM and Cordonnier JJ: Hemangioma of the bladder. J Urol 102: 581~585, 1969
- 6) Hendry WF and Vinnicombe J: Hemangioma of bladder in children and young adults. Brit J Urol 43: 309~316, 1971
- 7) Stanley KE: Hemangioma-Lymphangioma of the bladder in a child. J Urol 96: 51~54, 1966
- 8) Hamsher JB, Farrar T and Moor TD: Congenital vascular tumors and malformations involving urinary tract. J Urol 80: 299~310, 1958
- 9) Dessel JV and Michelsen JP: The Hemangioma of the bladder. Acta Urol Belg 46: 369~377, 1978
- 10) Proca E: Hemangioma of the bladder. Brit J Urol 49: 60, 1977
- 11) Klein TW and Kaplan GW: Klippel-Trenaunay syndrome associated with urinary tract hemangiomas. J Urol 114: 594~600, 1975
- 12) 原口泰彦・友田 宏：京都大学泌尿器科過去13カ年に於ける膀胱腫瘍の臨床的観察（附・膀胱血管腫例）。皮膚科紀要 46: 204~207, 1950
- 13) Liang DS: Hemangioma of the bladder. J Urol 79: 956~961, 1958

（1982年3月3日受付）