

縦 隔 海 綿 状 血 管 腫 の 一 例

京都大学結核胸部疾患研究所 胸部外科学部門

金城 明, 和田 洋己, 清水 慶彦

伊藤 元彦, 寺松 孝

同 第一内科学部門

牛田 伸一, 倉沢 卓也

I. は じ め に

縦隔の海綿状血管腫は比較的まれな疾患といわれており, 外国では1978年までに良性血管性腫瘍として100例未満の報告^{12~18)}のみであり, 国内でも20例余の血管腫瘍の報告^{1~11)}のみである。術前の診断は一般に困難とされているが, 我々は術前に診断を確定しえた縦隔海綿状血管腫の一例を経験したので報告し, 若干の考察を加えたい。

II. 症 例 18才男子

主訴: 胸部レ線上異常陰影 (自覚的無症状)

既往歴: 6才急性虫垂炎 (虫垂切除術)

15才急性肝炎

家族歴: 特に問題なし

現病歴:

生来健康であったが, 6才の時に胸部レ線上異常陰影を指摘された。京大胸部研を受診し, 良性腫瘍と判断され, 経過観察とされていた。

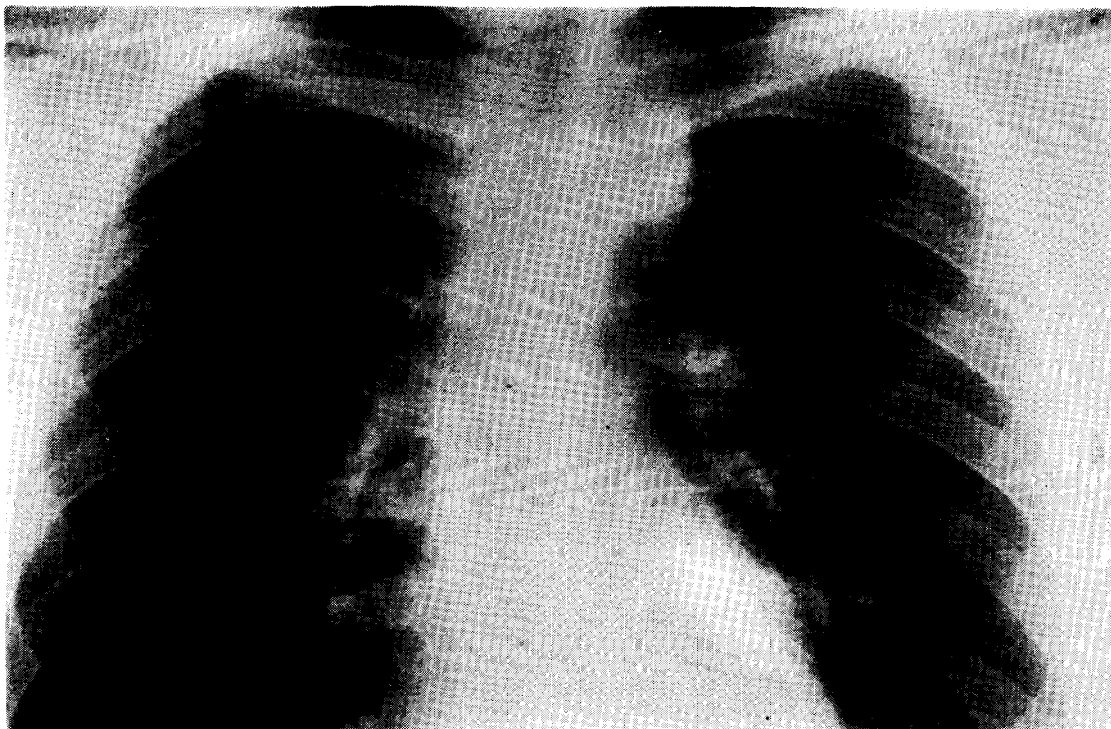


図1 上縦隔左方の異常陰影を示す

昭和54年4月の健診で、異常陰影の精査を指示され、京大胸部研へ入院となった。この間まったく無症状であった。

入院時、理学的所見、血液学的所見、心肺機

能所見等に異常は認めなかった。

胸部レ線写真(図1)では、上縦隔左方に異常陰影が存在し、大動脈弓とのシルエットが消失しており、上方も境界が不明である。6才と

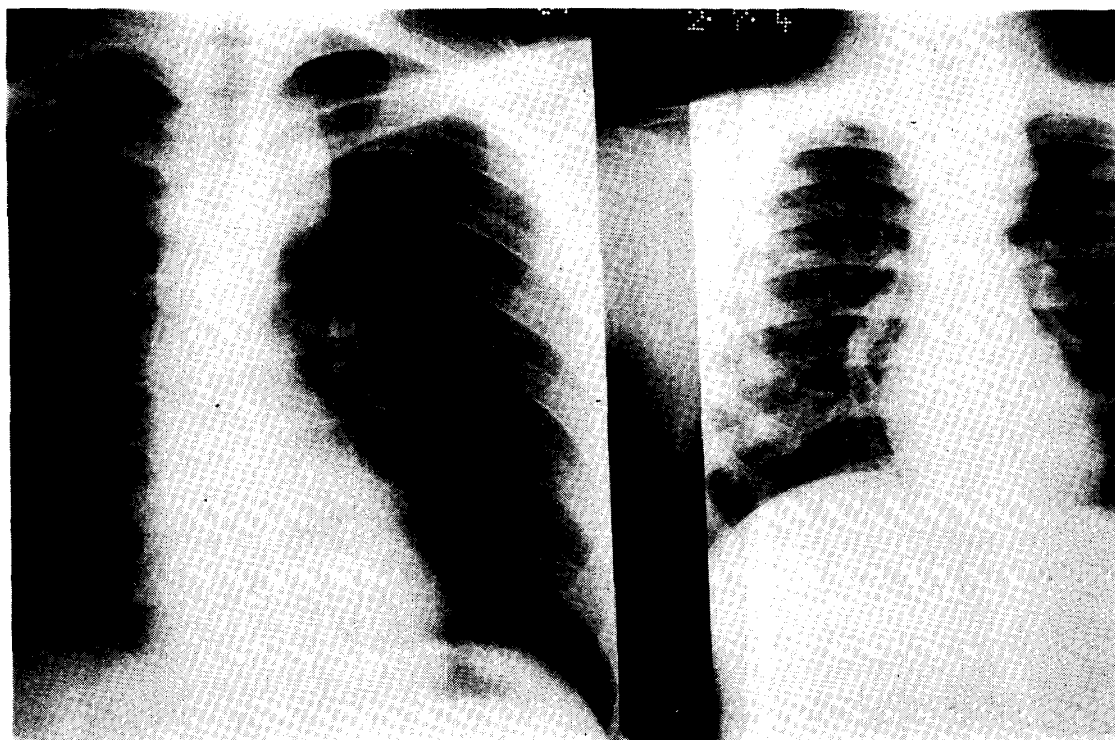


図2 6才(右)と18才(左)の胸部レ線の比較



図3 大動脈弓の高さのCT像

18才の時の胸部レ線写真を比較してみると(図2), 身体の成長に平行した異常陰影の拡大はあるが, 腫瘍が増大しているとは思われない。

大動脈弓の高さでのCT像(図3)では, 大動脈とは明瞭に区別され, しかも造影剤の使用で著明な enhancement を認める腫瘍として存在する。さらに, 別の高さでのCT像から, 左無名静脈, 鎖骨下動脈, 総頸動脈等とは区別される所見を得ており, 気管, 食道も異常はない。

図4は, 両側肘静脈から造影剤を注入した時の血管造影像であるが, 左無名静脈と副半奇静脈とを交通する静脈(左上肋間静脈)が腫瘍を貫通する形で造影されており, 腫瘍内で血管内腔が不定形に拡大し, 造影剤のうっ滞が認められる。これは内腔が海綿状を呈し広がっていることを推定させる所見である。また, 動脈との交通は存在しないことが推定される。

手術は胸骨縦切開による前方からの進入で行ない, 大動脈弓に接する腫瘍に到達した。腫瘍は, 脂肪組織と区別しにくい程度の硬さで, 丁寧に剥離を行なうと, 上下の血管以外に交通のある血管は存在せず, 無名静脈及び副半奇静脈

に交通する血管を結紮処理して腫瘍を摘出した。

図5は腫瘍の断面を示すが, 中心部に拡大し不整形となった血管内腔があり, 周辺部に多数の細かく区切られた形の小腔を見ることができる。

図6は, 摘出標本の上下の血管から圧を加えて造影剤を注入したところで, 腫瘍内に海綿状に造影剤が拡がり, 他との交通がないことを示している。

図7は40倍HE染色で観察した組織像で, 一層の内皮細胞で囲まれた大小の管腔が多数存在し, 血球を含み, 結合組織及び脂肪組織が介在している。これは十分に分化した海綿状血管腫であり, 悪性所見は認めない。

術後経過は良好であった。

III. 考 察

縦隔の海綿状血管腫は報告例が少なく, Baker¹⁵⁾ が1967年までの文献報告として70例の血管腫を挙げているにとどまり, 以後 Rosager¹⁶⁾, Kissin¹⁷⁾, Davis¹⁸⁾ 等の数例の報告を見るのみ



図4 静脈造影像

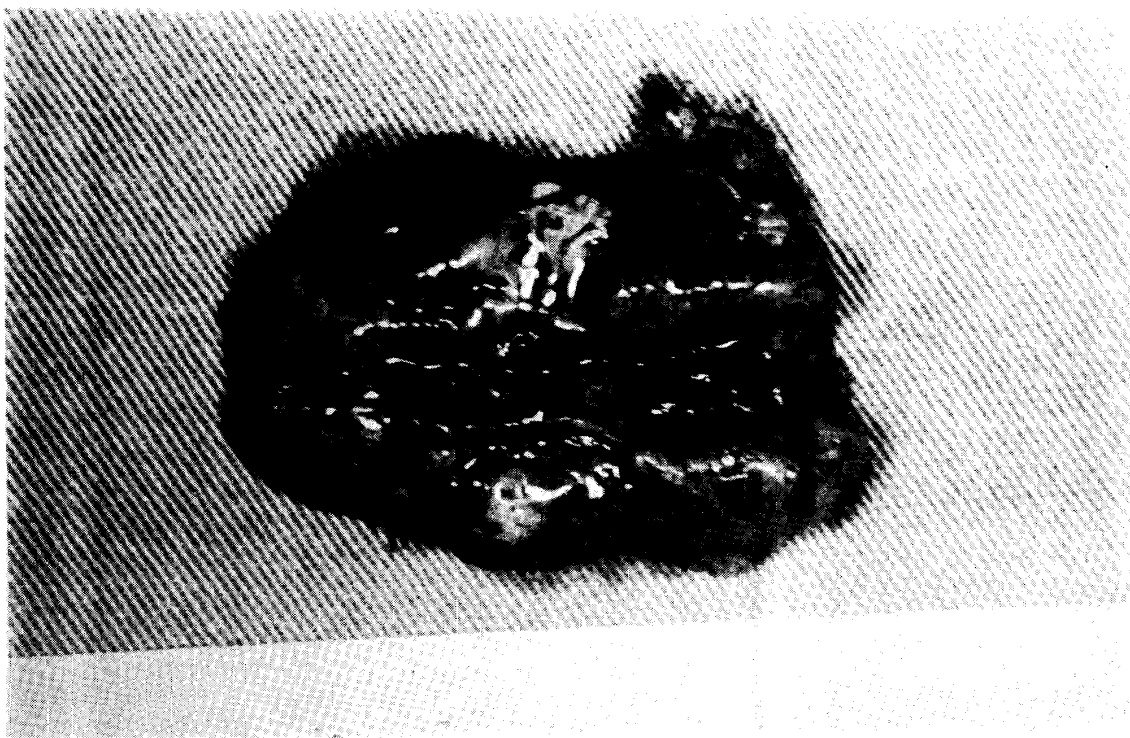


図5 腫瘍摘出標本の剖面

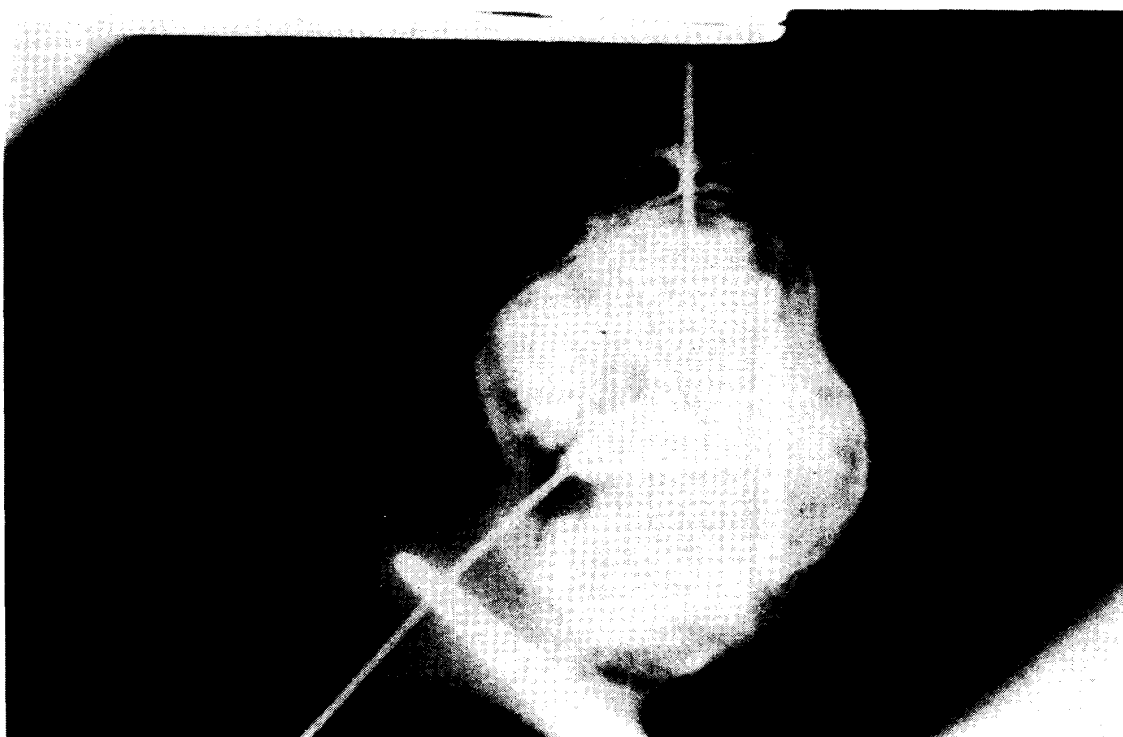


図6 摘出標本内の血管造影

である。国内では、正岡⁷⁾が1971年の集計で血管腫18例を集めており、その後、小松⁸⁾の2例、藤村⁹⁾の1例、黒島¹⁰⁾の2例、村田¹¹⁾の1例などとなっている。男女差はなく、1才から69

才までの報告があるが、多いのは25～35才という¹⁷⁾。縦隔の血管腫瘍の中では海綿状血管腫が一番多く、海綿状血管腫と毛細血管性血管腫とで血管腫全体の90%を占める¹⁸⁾。



図7 組織像(40倍, HE染色)

Balboa¹²⁾ は血管腫は前縦隔に多く、かつ、前縦隔のものは良性のものが多く、症状は、胸痛、咳嗽、呼吸困難、嗄声、嚥下障害等、縦隔腫瘍一般の症状のみで、半数はまったく無症状であったと述べている。これに対し、本邦では、前後縦隔での発生頻度の差異は認めない⁵⁾、という。

縦隔の血管性腫瘍は、身体他の部位に発生する血管性腫瘍と共通の組織像を呈する。その大部分は前述の毛細血管性血管腫及び海綿状血管腫であるが、その他のものとして、静脈性血管腫、動静脈奇型、血管線維腫、血管脂肪腫、Glomus 腫瘍、血管外皮腫などがある。

良性血管腫は様々な大きさの血管が集合し、多彩ではあるが、一般には薄く同一型の線維筋層壁があり一層の内皮細胞が並んでいる血管が、腫瘍性増殖を示しているものである¹⁸⁾。

悪性の頻度は16~30%で、血管肉腫の頻度は幼少児に高い。さらに、組織学的には良性のもので、浸潤性、悪性の態度をとるものがあり、病理学的に画一な分類は困難なことがある¹⁷⁾。

鑑別診断では、動静脈瘻、動脈瘤、他の縦隔

腫瘍などを区別しなければならないが、phlebolith の存在は鑑別に役立つ¹⁹⁾。本症例では静脈造影で腫瘍内血管がうまく描出され、鑑別が比較的容易であった。Kausch ら²⁰⁾ は44例の海綿状血管腫症例のみをリストアップし、その中で10例の血管造影の試みがなされていたが、血管腫が造影できた例は1例もなかった、と報告している。その理由は、血管腫の部分で循環が非常に遅延すること、血栓形成していることがあること、を挙げている。それに照らせば今回の造影の成功は、血管腫が造影剤の流入しやすい位置にあったこと、血栓が存在しなかったこと、などがその理由であろう。

血管腫治療の原則は、外科的腫瘍摘出術である。腫瘍が被包化され、かつ、小さい場合には容易である。しかし腫瘍が巨大で被包化されず、浸潤傾向を示す場合には、横隔膜神経、交感神経幹、迷走神経、上大静脈、無名静脈などの犠牲を余儀なくされることがあり、また手術操作に多大の危険を伴うことがある¹³⁾。悪性所見が存在する場合には、手術療法に放射線療法あるいは化学療法を併用するのが有効とされる^{15,17,21)}。

血管腫の起源について対立する2つの見解がある¹³⁾、とされる。すなわち、Ribbert (Bergstrom²²⁾) は「単分化性血管芽細胞が発生過程で隔離されたものであり、この組織は間葉の血管層から発達し、正常の血管網とは関係なく残存する。」と考えており、一方 Ewing²³⁾ は「血管腫はそれ自体機能している血管が過剰な成長をとげたものである。」と考えている。我々の症例における静脈造影の結果は、Ewingの説を支持する所見と考えられる。さらに、悪性奇形腫を母地にして血管腫が発生した事実も報告されている^{24,25)}。

VI. ま と め

我々は、比較的まれとされる縦隔の海綿状血管腫で、術前血管造影等により診断確定し、摘出手術を行なった一例を報告し、文献的考察を加えた。

縦隔の海綿状血管腫の臨床所見は、特に特徴的なものではなく縦隔腫瘍一般の所見にとどまるが、時に静脈結石 (phlebolith) の存在や血管造影で描出されることがあり、診断確定の一助となる。また CT 検査は、腫瘍の周囲組織、器官との関係が明らかになり、さらに、腫瘍の性格もかなり明らかになる点、有意義な検査法といえる。

血管造影等で我々が得た所見は、分化した血管腫の起源について、Ewing の説を支持する内容となっている。

文 献

- 1) 遠藤 徹ら：縦隔血管腫の一治験例，外科，22：6，587，1960.
- 2) 有瀧世界翁ら：縦隔に発生した海綿状血管腫の一例並びに血管原性縦隔腫瘍に関する文献的観察，小児科臨床，14：1，64，1961.
- 3) 斉藤 晃ら：乳児の縦隔血管腫1例，臨外，16：6，535，1961.
- 4) 羽田野茂：縦隔腫瘍，日外会誌，63：2，198，1962.
- 5) 麻生弘之ら：稀有害な縦隔腫瘍の手術治験例について，胸外，16：5，319，1963.
- 6) 安野守ら：幼児の血小板減少を伴った巨大な胸腔内血管腫，小児外科，31：9，1101，1969.
- 7) 正岡昭ら：縦隔外科全国集計，日胸外会誌，19：13，39，1971.
- 8) 小松作蔵ら：教室における縦隔腫瘍の治験，北外誌，18，1，1，1973.
- 9) 藤村重文ら：胸椎および後縦隔に併存せる血管腫の1治療，日胸外会誌，23：2，204，1975.
- 10) 黒島振重郎氏ら：比較的まれな縦隔腫瘍，日胸，35：8，592，1976.
- 11) 村田弘隆ら：縦隔内海綿状血管腫の1手術治験例，日外会誌，78：1，93，1977.
- 12) Balbaa, A. & Chesterman, J. T.: Neoplasms of Vascular Origin in the Mediastinum, Br. J. Surg. 44: 545, 1957.
- 13) Attar, S. & Cowley, R. A.: Haemangiomas of the Mediastinum, Am. Surg. 30: 141, 1964.
- 14) Toch, H., et al.: Hemangioma of the Mediastinum, Amer. J. Roentgen 94: 580, 1965.
- 15) Baker, J. M.: Unusual Vascular Tumors of the Mediastinum, Ann. thorac. Surg. 3: 358, 1967.
- 16) Rosager, K.: A Case of Angiomata of the Retroperitoneum & Mediastinum, Acta Chir Scand 139: 494, 1973.
- 17) Kissin, M. W.: Mediastinal Cavernous Hemangioma, Br. J. Dis Chest 71: 208, 1977.
- 18) Davis, J. M., et al.: Benign Blood Vascular Tumors of the Mediastinum, Radiology 126: 581, 1978.
- 19) Shorr, S., et al.: Mediastinal Tumor containing Phleboliths, Br. J. Radiol. 27: 305, 1954.
- 20) Kausch, E. & Homma, H.: Kavernöse Hämangiome, Radiol Austriaca 17: 13, 1967.
- 21) Das, P., et al.: Primary Malignant Tumors of the Mediastinum & their Management, Aust. N. Z. J. Surg. 45: 42, 1975.
- 22) Bergstrom, V. W.: N. Y. St. J. Med., 45: 1867, 1945.
- 23) Ewing, J.: Neoplastic Diseases: A Treatise on Tumors, 4th ed., Philadelphia: W. B. Saunders, 1940.
- 24) Ehrenreich, T., et al.: Hemangioendothelioma Arising in a Mediastinal Teratoma, Dis. Chest, 23: 294, 1953.
- 25) Schlumberger, H. G.: Atlas of Tumor Pathology: Tumors of the Mediastinum. Washington, D. C. 1951, National Research Council, Section V, Fascicle 18: 41, 43, 68, 69.

A CASE OF MEDIASTINAL CAVERNOUS HAEMAGIOMA

**Akira KANESHIRO, Hiromi WADA, Yoshihiko SHIMIZU,
Motohiko ITO, Takashi TERAMATSU,
Shin'ichi USHIDA, Takuya KURASAWA**

*Department of Thoracic Surgery & 1st Department of Medicine, Chest Disease
Research Institute, Kyoto University*

Cavernous haemangioma of mediastinum is very rare and definite pre-operative diagnosis is difficult. We reported here a case of mediastinal cavernous haemangioma which was diagnosed pre-operatively by venography, and reviewed the literatures on this disease. Concerning the origin of mediastinal cavernous haemangiomas, findings of our case support Ewing's hypothesis that haemangiomas arise from excessive development of pre-existing blood vessels.