

## 小児膀胱血管腫の1例

大阪府立母子保健総合医療センター泌尿器科 (部長: 島田憲次)

松本 富美, 島田 憲次, 細川 尚三, 鈴木 万里

## BLADDER HEMANGIOMA IN A CHILD: A CASE REPORT

Fumi MATSUMOTO, Kenji SHIMADA, Shozo HOSOKAWA and Mari SUZUKI

From the Division of Urology, Osaka Medical Center and Research Institute for Maternal and Child Health

We report a case of bladder hemangioma in a child. An 8-year-old girl was referred to our hospital for the evaluation of painless hematuria. Neither pyuria nor bacteriuria was detected. She had no dysuria. Intravenous pyelography showed deformity of the bladder without dilation of the upper urinary tract. Voiding cystourethrography revealed a filling defect of the bladder. Reddish blue masses were seen cystoscopically at the right wall and the dome of the bladder. Partial cystectomy was performed. From the histological findings, the diagnosis was cavernous hemangioma of the urinary bladder. Her postoperative course was uneventful and no recurrence was seen at the cystoscopic examination 3 months postoperatively. This is the 15th case of bladder hemangioma in children reported in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 43: 747-749, 1997)

**Key words:** Bladder hemangioma, Children

## 緒 言

血管腫は血管系の奇形ないし良性腫瘍を総括した広範囲にわたる疾患概念と定義され、小児の皮膚にみられるものは最もありふれた腫瘍のひとつであるが、膀胱にみられるものは稀である。最近われわれは、8歳の女兒にみられた膀胱血管腫の1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

## 症 例

患者: 8歳3カ月, 女兒

主訴: 肉眼的血尿

家族歴 既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 8歳3カ月時下着に淡いピンク色の汚染があるのに気づき、近医を受診。検尿にて多数の赤血球が確認されたが、膿尿は無かった。排尿状態に異常なし。静脈性腎盂造影 (IVP) を施行され、膀胱の変形がみられたため当科を紹介された。排尿時膀胱尿道造影 (VCG) にて膀胱の陰影欠損が確認され、精査加療目的に入院。

入院時現症: 身長 132.3 cm, 体重 31.0 kg. 体表および可視粘膜に異常を認めず 初潮(-)。

入院時検査成績: 血液一般, 生化学所見に異常を認めず 検尿では赤血球が多数みられたが, その他正常。尿細胞診は class I. 尿細菌培養陰性。

画像診断: IVP では上部尿路に異常を認めず 造影剤の膀胱への不均一な貯留がみられた。VCG にて膀胱の右壁より頂部にかけて広範な陰影欠損がみられ

た (Fig. 1)。排尿状態は良好であった。腹部 MRI では T1 および T2 強調画像いずれにおいても low intensity, 一部 high intensity な膀胱の右壁から頂部にかけて内腔に突出する腫瘍陰影が確認されたが、膀胱壁外への浸潤はみられず、明らかなリンパ節の腫張も無かった (Fig. 2)。選択的血管造影では骨盤腔内に異常血管の増生を認めず、静脈相でも濃染像は確認

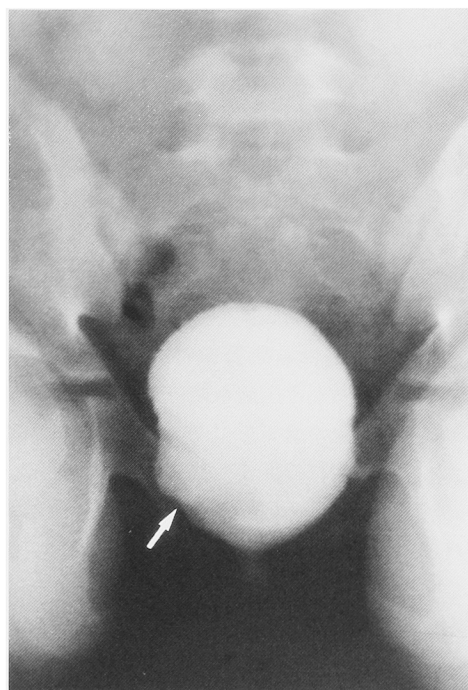


Fig. 1. VCG showed filling defects at the right wall and the dome of the bladder.

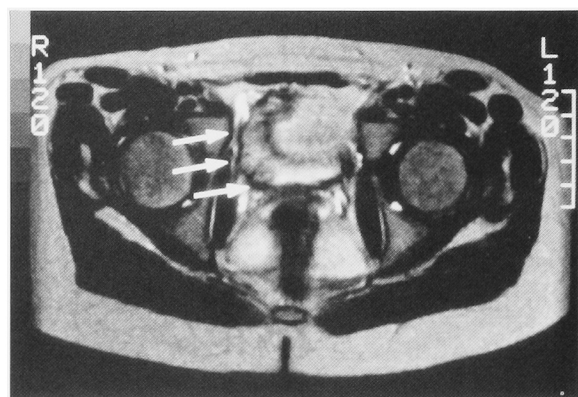


Fig. 2. MRI findings of the bladder hemangioma.

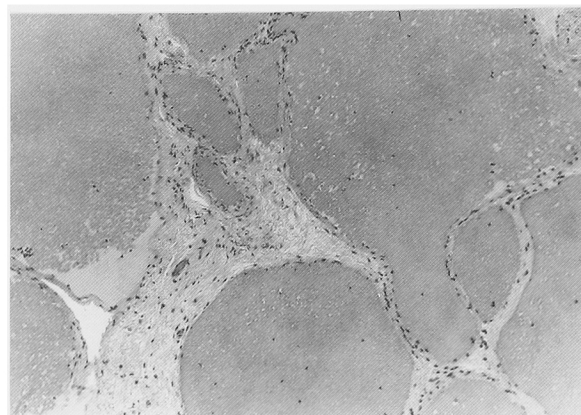


Fig. 3. Histological findings showed typical cavernous hemangioma.

Table 1. Summary of the 15 cases of bladder hemangioma in Japanese children

| 報告者    | 報告年  | 年齢 | 性別 | 主 訴      | 発生部位       | 大きさ          | 治療   |
|--------|------|----|----|----------|------------|--------------|------|
| 1 高橋ら  | 1935 | 13 | 女  | 血尿, 排尿困難 | 前壁         | 帽針大          | TUC  |
| 2 新澤ら  | 1939 | 9  | 女  | 血尿       |            | 小指頭大         |      |
| 3 長谷川ら | 1948 | 6  | 男  | 血尿, 尿失禁  | 頂部         | 鶏卵大          | 部分切除 |
| 4 市川ら  | 1963 | 13 | 女  | 血尿       | 頂部         |              | 部分切除 |
| 5 奥田ら  | 1964 | 15 | 女  | 血尿       | 頂部         | 鶏卵大          | 部分切除 |
| 6 山際ら  | 1964 | 10 | 男  | 頻尿, 尿失禁  | 頂部, 後壁, 前壁 | 鷲卵大          | 部分切除 |
| 7 石川ら  | 1968 | 8  | 男  | 血尿       | 後壁         | 小指頭大         | 部分切除 |
| 8 野田ら  | 1969 | 3  | 女  | 血尿       | 頂部         |              | 部分切除 |
| 9 前田ら  | 1970 | 8  | 女  | 血尿       | 頂部         |              | 部分切除 |
| 10 菅原ら | 1975 | 4  | 女  | 血尿       |            |              | 部分切除 |
| 11 井山ら | 1975 | 2  | 女  | 血尿       | 頂部         | 拇指頭大         | 部分切除 |
| 12 西田ら | 1980 | 6  | 女  | 発熱, 尿閉   | 後壁         | 小指爪大         | 経過観察 |
| 13 井上ら | 1988 | 6  | 男  | 血尿       | 頂部         | 大豆大          | TUR  |
| 14 太田ら | 1989 | 9  | 男  | 血尿       | 右側壁        | 8 mm         | TUR  |
| 15 自験例 | 1996 | 8  | 女  | 血尿       | 頂部, 右側壁    | 4×5 cm, 小指頭大 | 部分切除 |

されなかった。

内視鏡所見：右尿管口のすぐ側方より頂部にいたる広基性暗赤色の一部に隆起性青紫色の部位を含む腫瘍を認めたが、明らかな出血部位は同定されなかった。左側壁および三角部、膀胱頸部、尿道、外陰部に異常は無かった。

以上の所見より膀胱血管腫を強く疑い、腫瘍切除を目的とした膀胱部分切除術を施行した。

術中所見：腫瘍は右尿管口の約5 mm 頭側より右側壁から頂部に向かう広範な暗赤色、一部青紫色の広基性の隆起性病変の様相を呈していたが、正常な膀胱粘膜との境界は明瞭で、また漿膜面も肉眼的に intact であった。さらに、main tumor とは別に頂部より尿管管に向かう同様の腫瘍が併存していたため、臍に近い部位まで尿管管を含め切除した。

病理組織学的診断：main tumor, 尿管管部ともに粘膜下より一部筋層に至る部位に大小不同の拡張した内腔に多数の赤血球を含む一層の内皮細胞で覆われた血管およびリンパ管の著明な増生がみられ、海綿状血

管腫と診断された (Fig. 3)。悪性所見は認められなかった。

術後経過は良好で、一過性に頻尿および夜尿がみられたものの術後3カ月目に行われた膀胱鏡検査では残存する膀胱粘膜その他の部位に異常なく、腫瘍の再発はみられなかった。

## 考 察

血管腫は血管系の奇形ないし良性腫瘍を総括した広範囲にわたる疾患と定義され、体表面にみられるものは白人では小児の10～12%にみられるとの報告があり<sup>1)</sup>、ありふれた疾患のひとつであるが、膀胱にみられるものは比較的稀である。Melicow<sup>2)</sup>によると原発性膀胱腫瘍の0.6%とされ、Campbell<sup>3)</sup>らの報告では非上皮性良性腫瘍の26.4%を占めている。欧米ではこれまでに約80例の報告があり、2/3が15歳以下の症例であり小児期に発見されるものが多いが<sup>4)</sup>、本邦では全70例の報告中15歳以下のものは自験例を含め15例(21%)のみであった<sup>5,6)</sup>。

小児膀胱血管腫の本邦報告15例を Table 1 に示す。2歳から15歳の各年齢層にみられ、最近海外では新生児の報告例もある<sup>7)</sup>。男女比は1:2と一般の血管腫同様女児に多い。膀胱血管腫の患者の30%に膀胱以外の部位に血管腫の合併がみられたとの報告があるが<sup>8)</sup>、わが国では6歳女児の会陰部にみられた1例のみであった。15例中13例に肉眼的血尿があり、残りの2例は排尿異常を主訴としていた。部位は膀胱頂部が8例53%と最多で、大きさは鵝卵大と表記されたものが最大と思われたが、膀胱粘膜全体に散在するものはなかった。

診断はその特徴的な所見より内視鏡検査にて比較的容易である。小児では安全かつ確実な手段として全身麻酔下での施行が望ましい。

治療は比較的腫瘍径の小さなものに対しては経尿道的アプローチによる報告が増えつつある。欧米では各種レーザーの有効性が報告され、かなり大きな腫瘍でも良好な成績をおさめている<sup>9,10)</sup>が、過去においては3例の出血による死亡例もみられ、生検を含め経尿道的アプローチには入念な準備と注意が必要である。膀胱以外の部位にも血管腫の合併がみられ、いわゆるangiomatosisを呈する重症例や膀胱全体にびまん性にみられる例、頻回に再発を繰り返す例などではステロイド、interferon  $\alpha$ -2aの全身投与が有効とされているが、自験例の様に比較的大きな膀胱に限局した孤立性腫瘍の場合、安全かつ確実な治療法としては依然膀胱部分切除術が適していると思われる。

## 結 語

8歳女児にみられた膀胱血管腫の1例を報告した。膀胱血管腫は稀な疾患であるが、血尿をきたす小児の

鑑別疾患のひとつとして念頭におくべきである。

## 文 献

- 1) Fishman SJ and Mulliken JB: Hemangiomas and vascular malformations of infancy and childhood. *Pediatr Clin North Am* **40**: 1177-1200, 1993
- 2) Melicow MM: Tumors of the urinary bladder. *J Urol* **74**: 498-521, 1955
- 3) Campbell EW and Gislason GJ: Benign mesothelial tumors of the urinary bladder: review of literature and a report of a case of leiomyoma. *J Urol* **70**: 733-742, 1953
- 4) Fuleihan FM and Cordonnier JJ: Hemangioma of the bladder: report of a case and review of the literature. *J Urol* **102**: 581-585, 1969
- 5) 関井謙一郎, 高寺博史, 滝内秀和, ほか: 膀胱海綿状血管腫の1例. *泌尿紀要* **32**: 595-601, 1986
- 6) 西村憲二, 今津哲央, 辻村 晃, ほか: 膀胱血管腫の2例. *西日泌尿* **56**: 85-88, 1994
- 7) Fernandes ET, Manivel JC and Reinberg Y: Hematuria in a newborn infant caused by bladder hemangioma. *Urology* **47**: 412-415, 1996
- 8) Hendry WF and Vinnicombe J: Haemangioma of bladder in children and young adults. *Br J Urol* **43**: 309-316, 1971
- 9) Smith JA Jr.: Laser treatment of bladder hemangioma. *J Urol* **143**: 282-284, 1990
- 10) Kennedy WA, II, Hensle TW, Giella J, et al.: Potassium thiophosphate laser treatment of genitourinary hemangioma in the pediatric population. *J Urol* **150**: 950-952, 1993

(Received on May 6, 1997)

(Accepted on July 10, 1997)