

後腹膜に発生した動静脈奇形の1例

王 聡¹, 武田 健¹, 芝 政宏¹
高山 仁志¹, 棟方 哲²¹堺市立総合医療センター泌尿器科, ²堺市立総合医療センター病理診断科A CASE OF ARTERIOVENOUS MALFORMATION
LOCATED IN RETROPERITONEUMCong WANG¹, Ken TAKEDA¹, Masahiro SHIBA¹,
Hitoshi TAKAYAMA¹ and Satoru MUNAKATA²¹The Department of Urology, Sakai City Medical Center²The Department of Pathology, Sakai City Medical Center

A 67-year-old woman was referred to our hospital for precise examination and treatment as an abdominal computed tomographic (CT) scan showed a retroperitoneal tumor located below the hilus of the right kidney. The enhanced CT and magnetic resonance imaging (MRI) revealed contrast enhancement in both early and late phase, which confirmed that the tumor showed abundant blood perfusion and adhered to the duodenum. We performed open surgery in order to remove the tumor and make a precise diagnosis. The tumor was excised en bloc with a part of the gonadal vein because the right gonadal vein was adjacent to the tumor in the craniocaudal direction. The pathological diagnosis was arteriovenous malformation. Arteriovenous malformation located in the retroperitoneum is very rare.

(Hinyokika Kyo 62: 127-130, 2016)

Key words: Retroperitoneal tumor, Arteriovenous malformation

緒 言

動静脈奇形は脳や四肢に好発するが、後腹膜に発生した動静脈奇形は非常に稀である。

今回われわれは腹痛の原因精査にて偶然に発見された、後腹膜に発生した動静脈奇形の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 : 67歳, 女性

主 訴 : 腹痛

既往歴 : 約40年前に虫垂炎にて虫垂切除術

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 腹痛にて近医を受診。腹部CTにて右腎門部背側と十二指腸の間に腫瘤を認め、精査加療目的にて当科を紹介受診。

入院時現症 : 身長 : 150 cm, 体重 : 41.9 kg

体 温 : 36.4°C, 心拍数 : 85回/分, 血圧 : 123/68 mmHg.

入院時検査所見 : 血液生化学・尿検査で異常所見を認めず、ホルモン値も正常範囲内であった。

画像所見 : 腹部造影CTにて右腎静脈下縁と十二指腸の間に、早期層で濃染され (Fig. 1A)、後期層でも造影効果を伴う血流豊富な約3 cmの軟部腫瘤を認め (Fig. 1B)、右腎静脈から腫瘤へと1本の還流静脈を認

めた (Fig. 1C)。

腹部造影MRI T2強調像では不均一で高信号な造影効果を伴う腫瘤を認め (Fig. 2A)、冠状断像ではflow voidを疑うT2低信号を認めた (Fig. 2B)。

またMIBIシンチグラフィーでは異常集積を認めず、傍神経節腫瘍は否定的であった。

経過 : 画像診断では後腹膜腫瘍の鑑別診断は困難であり、患者からも強い手術希望があったため摘除手術を施行した。なお画像上腫瘍は十二指腸と下大静脈に密に接しており、腫瘍との癒着が懸念されたため開腹手術を選択した。

手術所見 : 腹部正中切開で腹腔内に到達し、上行結腸を脱転して後腹膜腔に達した。腫瘍と十二指腸との間の剥離は容易で、十二指腸を脱転すると、右腎静脈下縁と下大静脈との間に腫瘍を同定できた。腫瘍は褐色で柔らかく、周囲との癒着は認めなかったが、右性腺静脈と一部癒合していたため、それらを一塊として摘出した (Fig. 3A)。手術時間は122分、出血は100 mlであった。

摘出標本 : 腫瘍の大きさは3.5×2.5×2.0 cmで、内部は血液で充満されており (Fig. 3B)、性腺静脈は腫瘍内を貫通し、上下で交通していた。

病理組織学的所見 : 性腺静脈から交通していた流出静脈周囲に、HE染色では大小多数の不整な血管腔を認め、EVG染色では弾性線維を有する様々な血管壁



A



B



C

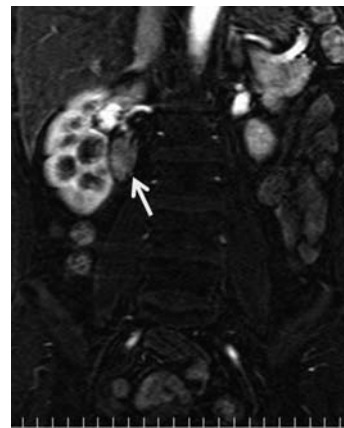
Fig. 1. Contrast enhanced abdominal CT scan Axial view shows retroperitoneal mass (white arrow) near the hilum of the right kidney with contrast enhancement in both early phase (A) and late phase (B). C: Draining vein of the tumor (arrow head).

肥厚を伴う変形血管の集族を認めることから動静脈奇形と診断された (Fig. 4A, B).

術後経過は良好で、術後14日目に退院となった。

考 察

動静脈奇形は動脈と静脈が正常な毛細血管床を介さずに、異常な交通を生じた先天性の病変である。発生



A



B

Fig. 2. A: Coronal view of contrast enhanced MRI shows a retroperitoneal mass (white arrow) with iso signal intensity with IVC and also has enhancement. B: The coronal view of T2-weighted MRI shows signal loss inside the tumor (white arrow) which is known as flow void.

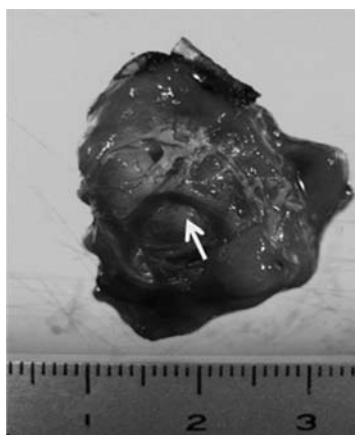
原因は不明で、男女比は同程度と考えられる¹⁾。好発部位は脳や四肢であるが、脾臓²⁾、肺³⁾、腎臓⁴⁾、脊髓⁵⁾、肝臓⁶⁾、肋間腔⁷⁾、虹彩⁸⁾、精索⁹⁾、骨盤¹⁰⁾の発生も文献上報告されている。われわれが文献検索しえた限りでは、過去に後腹膜に局在している動静脈奇形の症例報告はなく、自験例が1例目である。

自験例では腹痛を主訴に他院を受診したところ、偶然に腹部CTで後腹膜腫瘤として指摘されたが、症状は一過性のものでその後自然消失した経過を考慮すると、動静脈奇形との関連性が薄いと考えられる。

動静脈奇形の画像診断は主に超音波検査やMRI、CTで行われているが、digital subtraction angiography (DSA) は流入動脈と流出静脈を鑑別できるほぼ唯一のモダリティであり、治療を前提とした場合に変有用とされている¹¹⁾。自験例の場合、術中に流出静脈が性腺静脈であることは判明したが、DSAは施行されていないため、Feederとなる流入動脈は不明のままであった。MRIでは高流速血管は血流によるflow



A

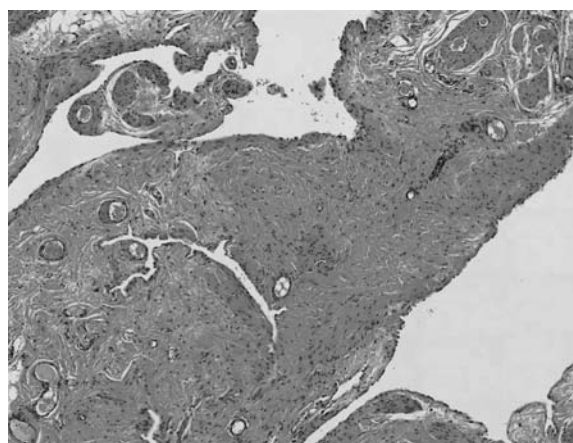


B

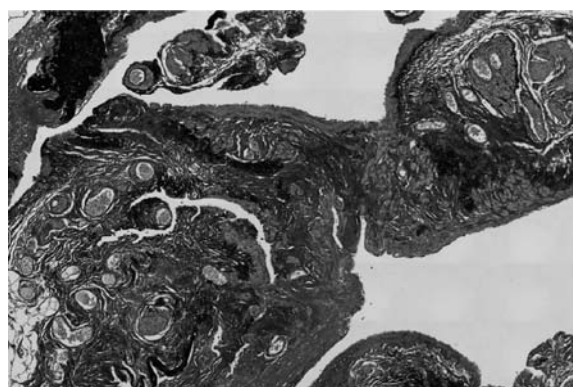
Fig. 3. A: We find the tumor (white arrow) adjacent to the right gonadal vein (arrow head) in the craniocaudal direction, the tumor was excised together with a part of the gonadal vein. B: The lumen of the tumor (macroscopic appearance). The tumor is soft and filled with blood inside, the wall of the tumor (white arrow) is smooth which looks like a blood vessel wall.

void と呼ばれる低信号を呈し、動静脈奇形に特徴的である¹¹⁾。自験例の術前 MRI 検査では flow void を疑わせる T2 低信号域を認めたが (Fig. 2B)、動静脈奇形としては発生が非常に稀である後腹膜に局在していたため、術前鑑別診断として動静脈奇形を積極的に疑うことは困難であった。

動静脈奇形の治療方針は主に経過観察、根治的外科切除、TAE に分類することができる。過去に後腹膜発生の報告例がないことから、治療に関しては共通するところが多いと考えられる骨盤部動静脈奇形の文献報告を参照とした。無症状で増大傾向のない症例では、経過観察が可能で、以後に6カ月ごとの超音波検査や CT による評価が必要と報告されている¹²⁾。一方、症候性および急激な増大傾向にある症例では、根治的外科切除や TAE が選択される。根治的治療の可能性が高いのは外科的完全切除であるが、重要臓器損傷や出血のリスク、再発例に対する再治療が困難であ



A



B

Fig. 4. A: Microscopically there are various sizes of small capillaries around the main draining vein (HE stain). B: The deformed walls of small capillaries have elastic fibers and consist of layers of various thickness (EVG stain).

ることから、適応は完全切除が期待できる限局性の小病変に限られている。完全切除が期待できない場合、塞栓療法や硬化療法が適応になるとされているが、外科的治療と同様に再発例が多いこと、塞栓物質による周囲臓器の虚血や肺塞栓などの問題が挙げられている¹³⁾。現段階では治療に関しては明確な基準はないのが現状である。

自験例において、画像診断で動静脈奇形と診断され、来院後も無症状で経過した場合は、無治療で経過観察することも選択肢の1つと考えられた。今回われわれは術前診断が困難であったため、外科的治療を選択し、完全切除しえたと判断しているが、再発の有無に関しては、今後も経過観察を要すると考える。

結 語

後腹膜に局在し、術前診断が困難であった動静脈奇形の1例を経験した。後腹膜に局在する血流豊富な腫瘍性病変として、動静脈奇形も鑑別すべき疾患であると考えられた。

本論文の要旨は、第229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) 三村秀文：国際血管腫・血管奇形学会 (ISSVA) 血管腫・血管奇形 診療ガイドライン2013, P 7
- 2) Agrawal A, Whitehouse R, Johnson RW, et al.: Giant splenic artery aneurysm associated with arteriovenous malformation. *J Vasc Surg* **44**: 1345-1349, 2006
- 3) Chowdhury UK, Kothari SS, Bishnor AK, et al.: Successful lobectomy for pulmonary arteriovenous malformation causing recurrent massive haemoptysis. *Heart Lung Circ* **18**: 135-139, 2009
- 4) Barley FL, Kessel D, Nicholson T, et al.: Selective embolization of large symptomatic iatrogenic renal transplant arteriovenous fistula. *Cardiovasc Intervent Radiol* **29**: 1084-1087, 2006
- 5) Kishi K, Shirai S, Sonomura T, et al.: Selective conformal radiotherapy for arteriovenous malformation involving the spinal cord. *Br J Radiol* **78**: 252-254, 2005
- 6) Bauer T, Britton P, Lomas D, et al.: Liver transplantation for hepatic arteriovenous malformation in hereditary haemorrhagic telangiectasia. *J Hepatol* **22**: 586-590, 1995
- 7) Rivera PP, Kole MK, Pelz DM, et al.: Congenital intercostal arteriovenous malformation. *AJR Am J Roentgenol* **187**: W503-506, 2006
- 8) Shields JA, Streicher TF, Spirokov JH, et al.: Arteriovenous malformation of the iris in 14 cases. *Arch Ophthalmol* **124**: 370-375, 2006
- 9) Sountoulides P, Bantis A, Asouhidou I, et al.: Arteriovenous malformation of the spermatic cord as the cause of acute scrotal pain: a case report. *J Med Case Rep* **1**:110, 2007
- 10) Gomes MM and Bernatz PE: Arteriovenous fistulas: a review and ten-year experience at the Mayo Clinic. *Mayo Clin Proc* **45**: 81-102, 1970
- 11) 大須賀慶悟：国際血管腫・血管奇形学会 (ISSVA) 血管腫・血管奇形 診療ガイドライン2013, P 24-27
- 12) Calligaro KD, Sedlacek TV, Savares RP, et al.: Congenital pelvic arteriovenous malformation: long-term follow-up in two cases and a review of the literature. *J Vasc Surg* **16**: 100-108, 1992
- 13) Pelz DM, Lownie Sp, Fox AJ, et al.: Symptomatic pulmonary complications from liquid acrylate embolization of brain arteriovenous malformation. *AJNR Am J Neuroradiol* **16**: 19-26, 1995

(Received on September 4, 2015)

(Accepted on November 27, 2015)