

脾過誤腫の1例

三上 佳子, 浦上 淳, 山下 和城, 真嶋 敏光, 岩本 末治,
木元 正利, 角田 司, 三上 芳喜*

今回我々は比較的稀である脾過誤腫の症例を経験したので報告する。症例は57歳男性、定期検診の腹部超音波検査で脾腫瘍を発見され、当院へ入院となった。特に症状はなく、入院時検査所見も正常範囲内であった。腫瘍は超音波検査では中心部は高エコー像で周囲が低エコー像を呈した。CTでは低吸収域像、造影CTでは強く濃染された。MRIではT1強調画像にて低信号を、T2強調画像にて高信号を示した。Gd-DTPA投与後のDynamic MRIでは早期相で高信号、後期相で等信号であった。血管造影では均一な腫瘍濃染像を呈した。画像所見より脾過誤腫を疑い脾摘出術を施行した。病理組織学的検索により赤脾髓型の脾過誤腫と診断された。術後、経過良好であった。脾過誤腫は画像診断においても特徴的な所見に乏しく、他の脾腫瘍との鑑別が問題となる。現状では診断と治療を兼ねて脾摘出術を行うのがよいと考えられた。

(平成12年9月14日受理)

A Case of Splenic Hamartoma

Yoshiko MIKAMI, Atsushi URAKAMI, Kazuki YAMASHITA,
Toshimitsu MAJIMA, Sueharu IWAMOTO, Masatoshi KIMOTO,
Tsukasa TSUNODA, Yoshiki MIKAMI*

We reported a case of splenic hamartoma, a rare disease. A splenic tumor was detected in a 57-year-old man by abdominal ultrasonography (US) during a physical examination, and he was referred to our department. There were no symptoms and laboratory data on admission were normal. On US, the center of the tumor was hyperechoic and the marginal area was hypoechoic. Computed Tomography (CT) showed the tumor to be of low density, and it was enhanced strongly in the spleen. The magnetic resonance imaging (MRI) disclosed a low intensity tumor on T1-weighted images and one with iso-intensity on T2-weighted images. A Gd-DTPA study showed a high intensity tumor during the early phase, and one with iso-intensity during the late phase. A homogenous and hypervascular tumor was revealed by splenic angiography. The tumor was diagnosed as a hamartoma and a splenectomy was performed. The histological diagnosis was a splenic hamartoma consisting of red pulp components. After the operation, the patient recovered with no difficulties and returned to his daily activities.

Although the differential diagnosis between the hamartoma and other splenic tumors is important, there is no characteristic finding for splenic hamartoma in image diagnosis. It is

川崎医科大学 外科消化器部門

〒701-0192 倉敷市松島577

* 同 病理学

Division of Gastroenterology, Department of Surgery,

Kawasaki Medical School: 577 Matsushima, Kurashiki,

Okayama, 701-0192 Japan

Department of Pathology

considered appropriate to perform splenectomy for the purposes of both diagnosis and treatment.

(Accepted on September 14, 2000) *Kawasaki Igakkaishi* 26(3): 167-172, 2000

Key Words ① Spleen ② Hamartoma ③ MRI

はじめに

脾臓の原発性腫瘍は比較的稀であり、中でも脾過誤腫は稀である。今回我々は脾摘出術を施行した脾過誤腫の1例を経験したので、画像診断を中心に若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

患者：57歳 男性

主訴：無症状（脾腫瘍の精査目的）

家族歴：特になし

既往歴：22歳時 虫垂切除術

現病歴：平成11年4月、定期検診の腹部超音波検査で脾に腫瘍を発見された。その後のCTで血管腫が疑われたため当院へ紹介され入院となった。

入院時現症：身長 165 cm, 体重 66 kg, 眼瞼結膜に貧血・黄疸は認めない。心臓に異常は認めず。腹部は平坦、軟で肝、脾は触知しない。表在リンパ節は触知しなかった。

入院時検査所見：末梢血一般及び血液生化学検査に異常を認めず。またAFP, CEA, CA19-9の腫瘍マーカーは正常範囲内であった。

画像所見：腹部超音波では脾内に 3.8×3.9 cm

の腫瘍影があり、中心部は高エコー、周辺部は低エコーで、境界は比較的明瞭であった (Fig. 1)。その他の腹腔臓器には異常所見は認めなかった。腹部CT検査では腫瘍は直径 5.0×4.5 cm, 境界明瞭で、単純では等吸収域像、造影では早期相で高吸収域像、後期相で等吸収域像であった (Fig. 2A, B)。

MRIではT1強調画像で低信号、T2強調画像で等信号、Gd-DTPA投与後のDynamic MRIでは早期相で高信号、後期相で等信号であった (Fig. 3A, B, C, D)。脂肪抑制では抑制されなかった。選択的血管造影では腫瘍はhypervascularで、静脈相で均一に濃染された (Fig. 4)。



Fig. 1. US shows the center of the tumor to be hyperechoic and the marginal area to be hypoechoic.

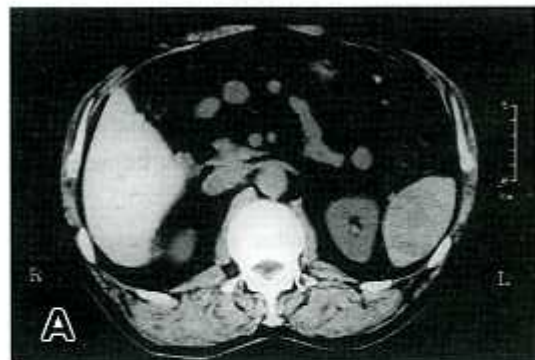


Fig. 2A. Abdominal CT shows a low density tumor in the spleen.

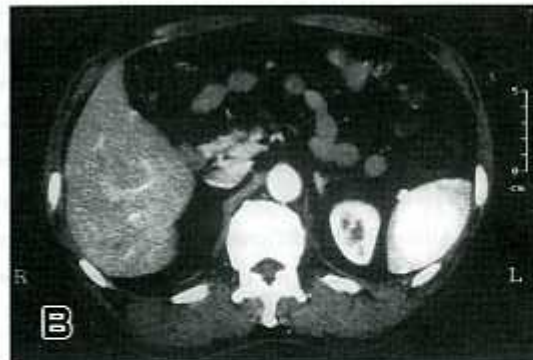


Fig. 2B. The tumor is enhanced strongly on enhanced CT.

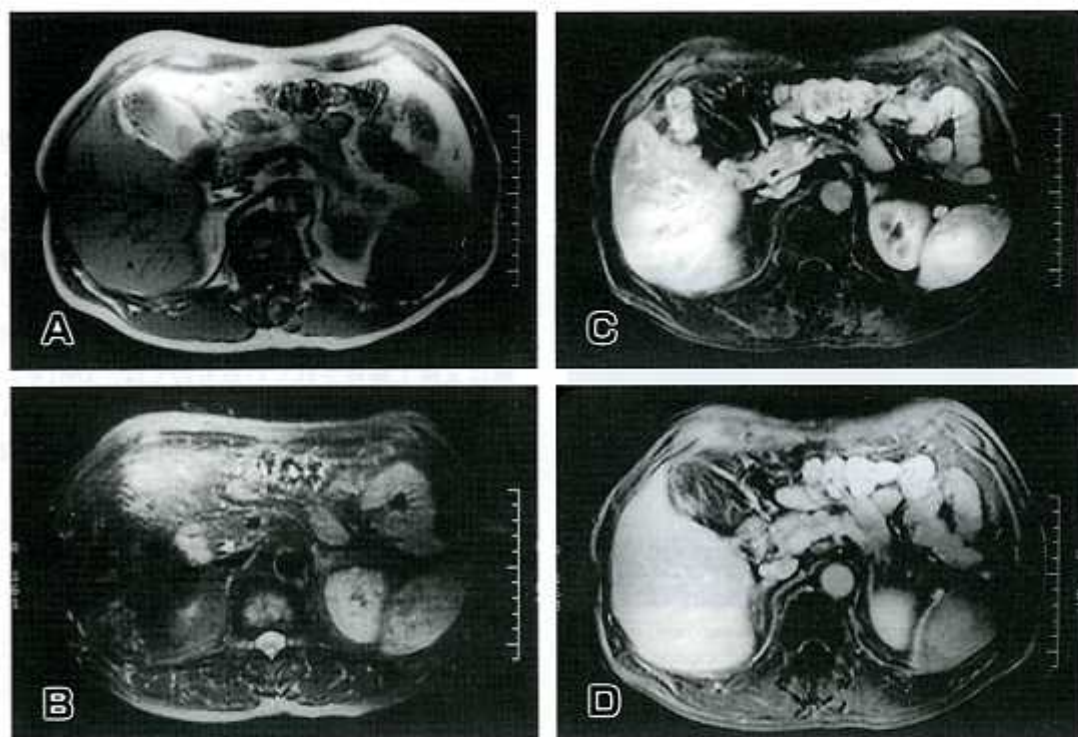


Fig. 3. MRI shows a low intensity tumor on T1-weighted images, TR/TE : 180/4.2 (3A) and one of iso-intensity on T2-weighted images, TR/TE : 4000/87.1 (3B). In a Gd-DPTA study, the tumor is of high intensity during the early phase (3C), and is of iso-intensity during the late phase (3D).



Fig. 4. Splenic angiography reveals a homogenous and hypervascular tumor.

以上より脾過誤腫が疑われたが、確定診断を兼ねて手術を施行した。

手術所見：上腹部正中切開にて開腹すると、脾臓は 8×5 cmとやや腫大していたが、表面は平滑で腫瘍は触知しなかった。周囲への浸潤、リンパ節の腫大もなく、腹腔内諸臓器に異常は認められなかった。脾摘出術を施行した。

摘出標本：脾は $10.5 \times 8.5 \times 4.5$ cm, 135 gで下極よりの外側部分が少し膨隆しており、若干硬度に差がみられた。この部分において、 3.2×3.0 cmの白色調を呈する病変が認められた。正常部との境界は比較的明瞭であったが被膜等はみられなかった (Fig. 5)。病理組織学的には、病変部では赤脾髄構成成分の増生がみられた



Fig. 5. A cut-surface of a resected specimen shows a solid and reddish tumor.

が (Fig. 6), 強拡大では, 正常部 (Fig. 7A, B) で認められるような繊細な輪状線維を伴う既存の脾洞の構造は失われ, 脾索の著明な肥厚と不規則に癒合する異常な血管腔が認められた (Fig. 7C, D), 悪性所見はなく, 脾過誤腫と診断された。



Fig. 6. Splenic hamartoma. Low power view, showing border of the lesion without distinct capsule, which is consisted of hyperplastic red pulp (lower left). (H&E×2)

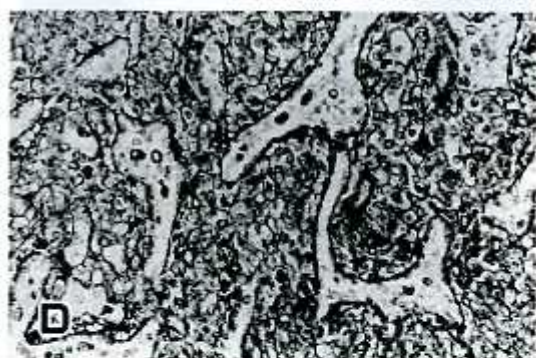
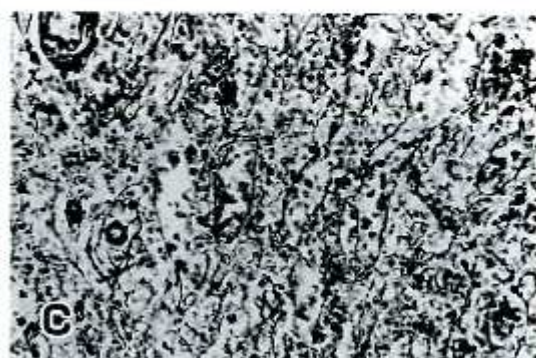
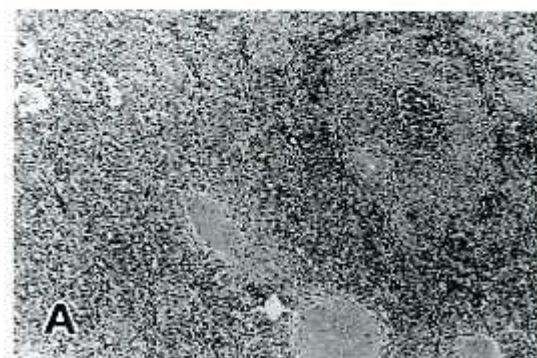


Fig. 7. High power view, showing normal red pulp (A) and hamartomatous portion (B). In the normal red pulp, sinusoids with fine ring fiber can be seen (C), whereas hamartomatous portion is composed of abnormally anastomosing vessels and intervening thickened cords (D). (7A, B: H&E×10. 7C, D: PAM×30)

考 察

脾過誤腫は臓器の正常な構成組織が発生過程で量的な異常, あるいは構造上の異常を伴って増殖する組織奇形と定義されている¹⁾。脾原発の良性腫瘍は稀な疾患であり, その中でも脾嚢胞, 血管腫, リンパ腫, 脾過誤腫が比較的多く, その他のものは非常に稀とされている。脾過誤腫は文献上報告されているものでは, 1861年に Rokitansky らによって報告されたのが最初とされ, その後に Silverman ら²⁾が91例を集計し報告しているが, 本邦では1973年に久野ら³⁾が1例を報告して以来, 現在までに約50例の報告があるにすぎない。

脾過誤腫の臨床症状に特有なものは乏しく, 自験例のように超音波検査にて偶然発見されたものや, 剖検にて発見されたものが多いとされ

ている。報告例のうち多くは無症状で発見されるが、有症状例では上腹部痛が最も多く、その他腹部膨満感や腹部不快感、悪心、全身倦怠感などであった。また脾機能亢進症による貧血や血小板減少を呈した症例¹⁾も報告されている。好発年齢は高年齢層に多いが、小児から高齢者まで幅広く分布し、男女比はほぼ同率かやや女性に多いとされている。

組織学的には増殖する組織成分により赤脾髄型（主に脾洞の増殖からなる）、白脾髄型（主にリンパ濾胞の増殖からなる）、混合型（赤脾髄型、白脾髄型の混合）、線維型（主に結合織からなる）に分けられ、赤脾髄型、混合型、線維型、白脾髄型の順に多いとされている。本邦における報告例のうちでも赤脾髄型が8割以上を占め、自験例も赤脾髄型であった。

本症の画像診断に関しては、超音波検査では辺縁明瞭で平滑な腫瘍で低ないし等エコー像を、CTでは単純で低吸収域、造影で辺縁明瞭な造影効果を有するものが多い²⁾。血管造影では腫瘍構成成分である赤脾髄と白脾髄の比率や脾洞内への造影剤の停滞の有無により avascular～hypervascular まで様々である。MRI に関しては報告例が少ないが、T1 強調画像で低～等信号、T2 強調画像で高信号、T1-Gd 画像で造影効果を有するものが多く報告されている³⁾。自験例でも T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号、Dynamic MRI では早期相で高信号、後期相で等信号と、同様の結果を得られたので脾過誤腫を疑った。しかし、T2 強調画像で低信号を呈した報告例もある^{7),8)}。脾過誤腫を含めた4疾患の画像診断上の特徴を Table 1 に示した

が、これらの画像所見はいずれも非特異的であり、悪性リンパ腫や転移性脾腫瘍などの悪性腫瘍との鑑別は困難と考えられる。放射性コロイドを用いたシンチグラフィや障害赤血球を用いたシンチグラフィなどの核医学検査では脾機能を有する組織では集積像を呈するという点で脾腫瘍病変の鑑別に有用であるとの報告例もあるが^{9),10)}、集積しなかった脾過誤腫の報告もあるため、集積しない症例で脾過誤腫を否定することはできない。さらに針生検による試みもされてはいるが¹¹⁾確定診断に至らず、かえって誤診されることも多く、確定診断は切除による病理組織診によらなければならないのが現状である。

治療においては、有症状例は治療の対象となり、脾機能亢進症による症状を呈したり、腫瘍破裂による大量出血例¹¹⁾などは手術の絶対適応である。基本的に脾過誤腫は良性の病変なので、本症の治療は確定診断がつけば脾摘出術の必要性はなく経過観察のみで良いと考えられる。しかし前述した様に脾過誤腫は他の脾原発性腫瘍との鑑別が難しいので、現状に於いては、過誤腫を疑って悪性腫瘍を否定できない場合は、診断と治療を含めて切除を行うのがよいと考えられた。

結 語

定期検診で偶然発見された脾過誤腫の1例を報告し、画像診断について考察を加えた。現状では、悪性腫瘍を否定できない場合は、脾摘出術を行うのが良いと考えられた。

Table 1. Image Findings in Splenic Lesions

Splenic lesions	US	Enhancement on CT and MRI	Angiography
Hamartoma	hypo-isoechoic	+	hypervascular
Malignant Lymphoma	hypochoic	-	hypovascular
Metastatic Tumor	hypochoic	±	hypo-hypervascular
Hemangioma	hyperechoic	±	hypervascular

文 献

- 1) 横山 肇, 森沢成司: 脾臓-基礎と臨床-, 東京, 医学図書出版, 1983, pp 214-264
- 2) Silverman ML, LiVolsi VA: Splenic hamartoma. *Am J Clin Pathol* 70: 224-229, 1978
- 3) 久野修資, 住吉昭信, 田中健蔵: 脾の過誤芽腫-1手術例の報告とその組織発生に関する考察-, 福の臨床 19: 1193-1198, 1973
- 4) 乳原善文, 守永真一, 山口 潜, 塚田理康, 松下 央: プレドニンの投与, さらに腫瘍摘出により血小板の正常化を見た血小板減少を伴った脾過誤腫の1例, 臨床血液 29: 1083-1087, 1988
- 5) 信澤 宏, 宗近宏次, 渡部政和, 佐久間秀夫, 丸島巳樹, 森谷聡男, 菱田豊彦: 脾過誤腫の画像所見-文献的考察, *Jpn J Imaging 画像医学誌* 11: 353-361, 1992
- 6) 木下貴之, 窪地 淳, 松井英男, 大石 崇, 磯部 陽, 奥田 誠, 池内駿之, 島 伸吾: 野動脈瘤を合併した多発性脾過誤腫の1例, 日消外会誌 29: 1683-1687, 1996
- 7) 明楽 恵, 北村いずみ, 大土庄一, 藤野正興, 中島清一, 宗田滋夫, 大島正人: MR T2強調画像で低信号を呈した脾過誤腫の1例, 日生医誌 23: 86-92, 1995
- 8) 三草貴彦, 江田 泉, 山中正康, 曾我浩之, 清水信義: 脾過誤腫の2例, 日消外会誌 28: 874-878, 1995
- 9) 栗屋美佐子, 長岡 栄, 本間 敏, 西川英一, 谷村陽子, 谷村 晃: ^{99m}Tc -スズコロイドシンチが診断に有用であった脾過誤腫の1例, 臨床放射線 42: 1075-1078, 1997
- 10) Hitoya O, Tomon K, Shohei K, Masanori Y, Shunji Y, Minoru U, Hiroji A, Naomi T, Masayuki S: ^{99m}Tc -DTPA-HSA uptake in a case of splenic hamartoma. *Ann Nucl Med* 10: 449-451, 1996
- 11) Ferguson ER, Sardi A, Beckman EN: Spontaneous rupture of splenic hamartoma. *J La State Med Soc* 145: 48-52, 1993