

症例報告

剖検により診断された非外傷性脾血管腫破裂の1例

獨協医科大学 内科学（消化器）

吉田 憲司 生沼 健司 平石 秀幸

福田記念病院 内科

村上 直彦 中津川昌利 福田 晴美

同外科3

高橋 秀光

獨協医科大学 病理学（人体分子）

小野 祐子

要 旨

症例は63歳の男性。主訴は呼吸苦、黒色便と腹部膨満感。身体所見と血液検査で貧血を認め、鉄剤の経口投与を開始。5日後下痢と腹部膨満感を訴えて再度来院。腹部超音波検査で腹水を認め、利尿剤を開始したところ腹部膨満感は軽快。しかし、5日後腹部膨満感が再度出現したため当院受診。呼吸苦と顔色不良および黒色便を認め、消化管出血を疑い同日入院。血液検査で貧血を認めたが、上部消化管内視鏡検査では出血源を認めず、同日腹痛、血圧の低下を認め、貧血の増悪あり濃厚赤血球を投与。腹部単純CTで腹水を認め、その2日後の試験穿刺で血性腹水を確認。腹腔内出血と診断したが出血源は同定できず、同日状態が悪化し死亡した。病理解剖を行い、脾血管腫破裂を認め、同部からの出血による出血性ショックと診断した。生前に診断困難で、剖検により脾血管腫破裂と診断した1例を経験したので報告する。

Key Words：脾血管腫，非外傷性脾破裂，腹腔内出血

緒 言

脾血管腫は他の原発性脾腫瘍に比べると比較的頻度が高いが、原発性脾腫瘍自体は非常に稀な疾患である。一方、脾破裂のほとんどは外傷性のものであるが、外傷の既往のない非外傷性脾破裂は非常に稀である。今回我々は、出血性ショックにて状態が悪化し死亡したが、生前には診断が困難であり、剖検により脾血管腫破裂と診断した1例を経験したので報告する。

症 例

症 例：63歳，男性

主 訴：呼吸苦，腹部膨満感，下血

既往歴：脊椎カリエス，高血圧，肥大型心筋症

現病歴：平成14年4月中旬より37℃台の発熱を繰り返し、その都度外来で投薬を受けていた。7月19日の診察で身体所見上貧血を認め、血液検査でHb 7.4 g/dlであったため鉄剤の経口投与を開始した。7月24日に下痢と腹部膨満感を訴えて再度来院。腹部超音波検査で腹水を認め、利尿剤を開始したところ腹部膨満感は軽減した。7月29日の朝より腹部膨満感が再度出現したため徒歩にて外来受診。呼吸苦と顔色不良および黒色便を認め、同日精査加療の目的で入院となった。

入院時現症：身長145.2 cm，体重45.0 kg，体温36.9℃，血圧138/76 mmHg，脈拍97/分・整。意識清明。眼瞼結膜に貧血を認め、眼球結膜に黄疸なし。リンパ節触知せず。胸部聴診上，心音純，呼吸音清。腹部所見上，平坦，軟で，肝，胆，脾，腫瘍は触知せず。下肢に浮腫を認めず。

平成17年10月25日受付，平成17年12月15日受理
別刷請求先：吉田憲司

〒321-0293 栃木県下都賀郡壬生町北小林880
獨協医科大学 内科学（消化器）

表1 入院時検査データ

AST	22	U/l	WBC	13600	/ μ l
ALT	11	U/l	RBC	275	$\times 10^4$ / μ l
ALP	246	IU/l	Hb	8.0	g/dl
γ GTP	31	U/l	Ht	24.9	%
T-Bil	0.84	mg/dl	Plt	28.7	$\times 10^4$ / μ l
TP	7.3	g/dl	AFP	3.5	ng/ml
alb	3.7	g/dl	CA19-9	16	U/ml
BUN	20.6	mg/dl	HBsAg	(-)	
Cre	0.97	mg/dl	HCVAb	(-)	
BS	125	mg/dl	ワ氏	(-)	
AMY	100	U/l	便潜血	(+)	

入院時検査所見：白血球数13600/mlへの上昇とHb 8.0 g/dlと貧血を認めたが、肝機能、腎機能等特に異常を認めず、便潜血反応陽性であった(表1)。

7月24日腹部超音波所見：腹水を認めるほか、特記すべき事なし(図1)。

経過：入院時黒色便を認め、血液検査でHb 8.0 g/dlであったため、上部消化管出血を疑い、上部消化管内視鏡検査を施行したが、出血源を認めず、翌日注腸検査を予定し経過観察していたところ、同日午後11時頃に腹痛が出現し、血圧の低下も認め、血液検査でHb 5.9 g/dlと貧血の進行を認めたため濃厚赤血球を投与した。翌7月30日の腹部単純CT(図2)上、腹水を認めたため腹腔内出血を疑ったものの、脊椎カリエスによる体幹の変形、ショックなどの全身状態も鑑みて、安全に試験穿刺できるほどの量はなく、経過観察とし、7月31日に腹水の増加を認めたため試験穿刺を行い、血性腹水を確認した。腹腔内出血と診断したが出血源の同定には至らず、同日状態が悪化し死亡した。腹腔内出血の原因が不明であるため病理解剖を施行した。

病理解剖所見：血性腹水は3000 ml認められ、脾臓については脾臓全体に静脈の拡張を認める静脈性の血管腫であり、拡張した血管壁は変性、壊死に陥っており、脾臓背側部で拡張した静脈に小さな破綻が認められた。

剖検の脾臓のマクロ像においては、脾表面からも被膜下の血腫が認められており、剖面像においては脾の実質の多くは血管腫にて置換されていた(図3)。脾臓部の病理組織像(40倍)では、脾臓のリンパ濾胞を認めており、拡張した血管像も認められた(図4)。脾動静脈奇形破裂痕を認めたため、同部からの出血による出血性ショックと診断した。また、上行結腸に虚血性大腸炎による潰瘍瘢痕が散在性に認められた。

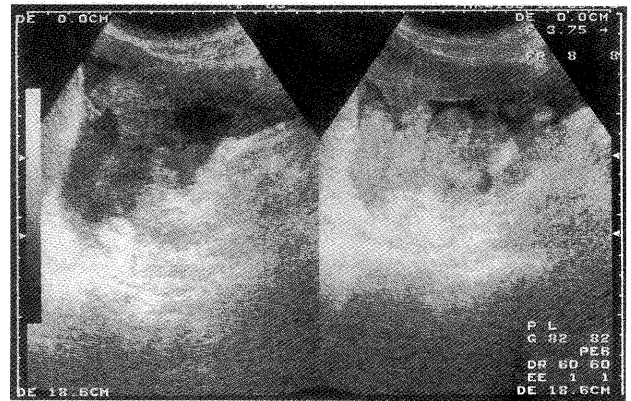


図1 腹部超音波所見

7月24日外来受診時施行。腹水を認めるほかには著変を認めなかった。

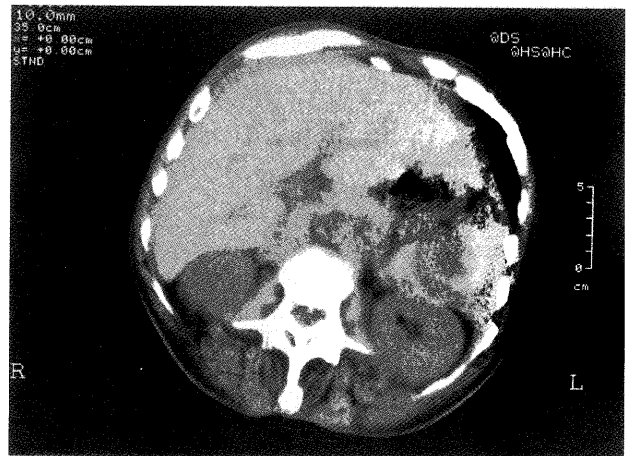


図2 腹部X線単純CT

7月30日施行。肝周囲と脾周囲に少量の腹水を認め、脾実質に低吸収域ととれる所見が診断後にみれば存在していた。

考 察

原発性脾腫瘍は非常に稀な疾患であり、Bostickの報告¹⁾では剖検11,707例、手術68,820例を合わせてもわずかに6例のみとされており、剖検上では全腫瘍中の0.64%の頻度であった。原発性腫瘍としては脾嚢胞、血管腫、リンパ腫、過誤腫等が報告されている。そのうち、血管腫は比較的頻度が高いとされているが、Pinesら²⁾は3,676剖検例中わずかに6例に血管腫が見られたとしており、本邦では千葉ら³⁾によると72例報告されているに過ぎない。

脾血管腫は小さいものでは無症状のことが多いが、10 cmを超えるものでは腹満感、腹痛等の腹部症状が現れることがある。また、溶血による貧血、血小板減少、血液凝固異常等の脾機能亢進症、Kasabach-Merritt症候

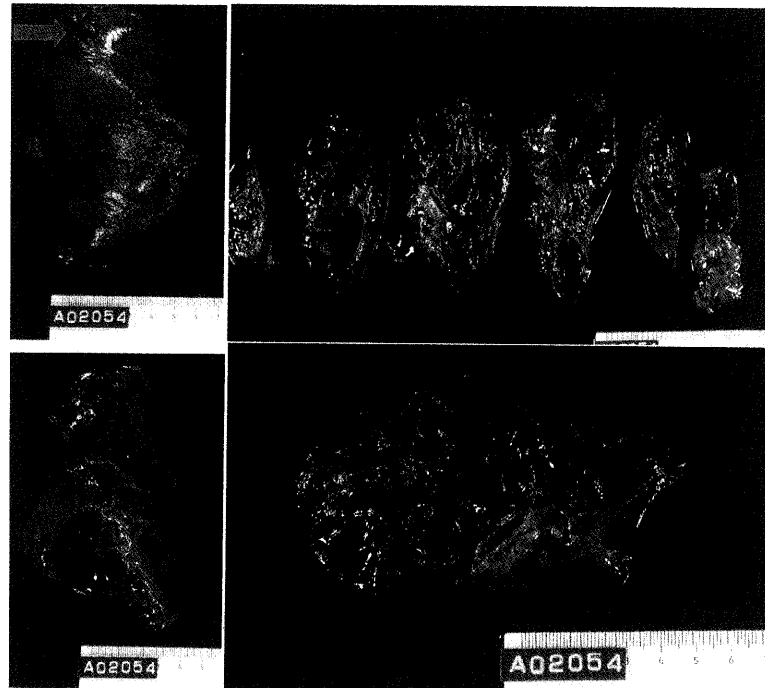


図3 剖検マクロ像

脾表面からも被膜下の血腫が認めるとともに、脾背側部に脾動静脈奇形破裂痕と考えられる拡張した静脈の小さな破綻が認められ（図中矢印）、剖面像においては脾の実質の多くの部分が血管腫により置換されていた。

群等を伴うこともある⁴⁾。

脾血管腫の画像上の特徴は、典型例では肝血管腫と同様の所見とされ、超音波では境界明瞭な高エコー性腫瘍として描出され、単純CTでは低吸収性で、造影CTでは周囲よりの造影効果があるとされている⁵⁾。血管造影では動脈相での tumor staining と静脈相での pooling 像が認められ、MRIではT1強調像で low intensity mass、T2強調像で high intensity mass として描出され⁶⁾、シンチグラムでは cold defect として描出される⁷⁾。しかし、脾血管腫は嚢胞形成、腫瘍内出血、線維化などを伴いやすく、また、多発することもあるため⁸⁾、典型的な画像を示さない例も多い。本症例で施行された腹部超音波上は少量の腹水を認めるほかは脾実質や脾周囲に典型像を示さなかったが、画像所見を見直すと、単純CTにおいては肝周囲と脾周囲に少量の腹水を認め、脾実質に低吸収域ととれる所見が存在していた。

脾血管腫の臨床経過としては、自然破裂、脾機能亢進、悪性化等が挙げられており⁹⁾、①悪性腫瘍の否定ができない、②腹部症状がある、③破裂の危険性がある、④急速に増大する、⑤コントロール不能の脾機能亢進がある、⑥Kasabach-Merritt症候群を合併する症例などが手術適応となる¹⁰⁾。

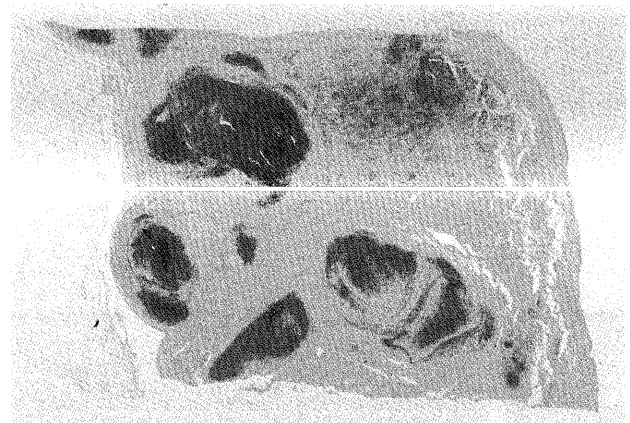


図4 病理組織像

脾臓のリンパ濾胞と拡張した血管像を認めた。

また、脾臓破裂は、外傷性と非外傷性とに分類されており、外傷性は上腹部の鈍的な外力によって起こりやすく、決して症例数は少ない。一方、非外傷性脾破裂は比較的少なく、その原因として報告の多いものは、白血病、悪性リンパ腫、転移性腫瘍などの腫瘍性脾腫、マラリア、A型肝炎、伝染性単核球症などの感染性脾腫があげられる¹¹⁾。Willcoxら¹²⁾は、Mayo Clinicにおいて、8年間に経験された脾血管腫は32例のみであり、その内

の8例(25%)で非外傷性脾破裂を認めたと報告している。この報告から、本症例のような脾血管腫の非外傷性破裂は稀である。

また、脾破裂の治療としては出血量と出血速度が手術適応の目安として重要であり、一般に1000 ml以上の出血量や、1時間あたり200 ml以上の出血速度の場合は手術適応となる¹³⁾。1000 ml以下の腹腔内出血では、循環動態が許せば血管造影を行い、造影剤の血管外漏出像を認めたときには選択的な塞栓術が適応となるとされる¹³⁾。ただし、非外傷性脾破裂に対して塞栓術を施行した報告はなく、伝染性単核球症、マラリアに伴う感染性脾破裂に対して塞栓術を施行した報告が2例^{14, 15)}あるのみであった。本症例においては、黒色便、便潜血陽性と貧血を認めたことから消化管出血を疑ったこと、外傷の既往のなかったこと、さらに画像上の診断がその時点では困難であったことから確定診断にいたらなかった。その間に全身状態が急変し、死亡に至ったため、脾破裂に対する処置がなされなかった。もし本症例が早期に確定診断がされていれば、手術の適応であったと考えられた。

本症例の経過を顧みると、7月19日に認められた貧血は、下血の訴えはなかったものの、剖検の時点において上行結腸に潰瘍瘢痕が散在性に認められたことから、虚血性大腸炎によるものであった可能性が考えられた。脾破裂は、7月29日の腹痛、貧血の進行、およびショックの出現した時点で発症したものと考えられ、7月30日に血管造影検査が施行されていれば、確定診断にいたり、治療がなされた可能性もあると考えられる。

本症例は、非常にまれな症例であることに加え前述したような要因により確定診断に至らなかったが、腹腔内出血の鑑別診断には脾破裂を念頭に置き、身体所見、画像所見等を正確に把握することが早期の確定診断に必要であると考えられた。

結 語

今回我々は非常に稀な脾血管腫を原因とする非外傷性脾破裂による出血性ショックの1症例を経験した。治療にあたり、早期の確定診断が必要と考えられた。

文 献

1) Bostick WL. : Primary splenic neoplasma. Am J

Pathol, **21** : 1143-1165, 1945.

- 2) Pines B, Rabinovitch J. : Hemangioma of the spleen. Arch Pathol, **33** : 487-503, 1942.
- 3) 千葉康男, Ibrahim Mohamed, 天田憲利 : 脾血管腫および脾過誤腫. 小児外科, **28** : 338-342, 1996.
- 4) 宮本敦史, 多田正知, 戎井 力, 他 : Kasabach-Merritt症候群を呈した脾血管腫の一例. 日消外会誌, **31** : 76-80, 1998.
- 5) 楠山 明, 吉見 優, 半沢 隆, 他 : 脾毛細血管腫の一例. 外科診療, **31** : 1716-1720, 1989.
- 6) Peene P, Wilms G, Stockx L, et al : Splenic hemangiomatosis. CT and MR features. J Comput Assist Tomogr, **15** : 1070-1073, 1991.
- 7) 早坂和正, 斎藤泰博, 菊地雄三, 他 : 肝脾シンチグラムで“hot spot”を呈した脾血管腫の一例. 核医学, **25** : 1279-1282, 1988.
- 8) 澤井照光, 國崎忠臣, 中尾治彦, 他 : 脾血管腫の一例. 日消外会誌, **25** : 911-915, 1992.
- 9) Husui EA. : The clinical course of splenic hemangioma. Arch Surg, **83** : 681-688, 1961.
- 10) 武部敦志, 小野山裕彦, 裏川公章, 他 : 悪性疾患との鑑別が困難であった脾血管腫の1例. 済生会中津年報, **10** : 144 - 148, 1999.
- 11) 横江隆夫, 森下靖雄, 飯野佑一, 他 : 遅発性脾破裂の1手術例. 日本腹部救急医学会雑誌, **16** : 977-979, 1996.
- 12) Willcox TM, Speer RW, Schlinkert RT, et al : Hemangioma of the spleen : presentation, diagnosis, and management. J Gastrointestinal Surg, **4** : 611-613, 2000.
- 13) 松本敏文, 北野正剛 : 救急疾患最近の対処法 脾臓(外傷性脾破裂). 外科, **61** : 1531-1533, 1999.
- 14) Halkic N, Vuilleumier H, Qanadli SD. : Spontaneous splenic rupture in infectious mononucleosis treated by embolization of the splenic artery. Can J Surg, **47** : 221-222, 2004.
- 15) Ribordy V, Schaller MD, Martinet O, et al : Spontaneous rupture of the spleen during malaria treated with transcatheter coil embolization of the splenic artery. Intensive Care Med., **28** : 996, 2002.

A Case Report of Non-Traumatic Rupture of Splenic Hemangioma Diagnosed by Autopsy

Kenji Yoshida¹, Naohiko Murakami¹, Masatoshi Nakatsugawa², Takeshi Oinuma¹,
Harumi Fukuda², Hidemitsu Takahashi³, Yuko Ono⁴, Hideyuki Hiraishi¹

*Department of Gastroenterology¹, and Department of Surgical and Molecular Pathology⁴,
Dokkyo University School of Medicine, Mibu, Tochigi 321-0293;
Internal Medicine² and Surgery³, Fukuda Memorial Hospital, Namiki, Moka, Tochigi 321-4361, Japan*

Non-traumatic rupture of the splenic tumor is a rare condition. We report a case of the non-traumatic rupture of splenic hemangioma in a 63 year-old male patient. His clinical presentations were dyspnea, abdominal fullness and tarry stool, which made us suspect gastrointestinal bleeding. However, no bleeding focus was observed on esophago-gastro-duodenoscopy. Ascites was detected on computed tomography and abdominal paracentesis showed that it was bloody. On the basis of these observations, we diagnosed his illness as the intraabdominal bleeding, but could not

clarify the origin of the bloody ascites. The patient was dead from hypovolemic shock due to intraabdominal bleeding. Pathological examination showed that the intraabdominal bleeding was caused by non-traumatic rupture of splenic hemangioma and that his tarry stool was caused by ischemic colitis.

Key Words : splenic hemangioma, non-traumatic rupture, intraabdominal bleeding