

CASE REPORT

術前診断に難渋した縦隔海綿状血管腫の2例

藤元静太郎¹・三好 圭¹・尾立西市²・古賀智子¹・
田村和貴³・八谷泰孝²・小田義直⁴・中村雅史¹

Two Cases of Mediastinal Cavernous Hemangioma in Which the Preoperative Diagnosis Was Difficult

Seitaro Fujimoto¹; Kei Miyoshi¹; Seiichi Odate²; Satoko Koga¹;
Kazuki Tamura³; Yasutaka Hachiya²; Yoshinao Oda⁴; Masafumi Nakamura¹

¹Department of Surgery and Oncology, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University, Japan; ²Department of Surgery, Kyushu Rosai Hospital, Japan Organization Occupational Health and Safety, Japan; ³Department of Surgery, Obase Hospital, Social Medical Corporation Youmeikai, Japan; ⁴Department of Anatomical Pathology, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Cavernous hemangioma in the mediastinum is relatively rare, accounting for ≤0.5% of all mediastinal tumors. **Case 1.** A 72-year-old woman was found to have an abnormal shadow at a medical examination. Chest computed tomography showed a 27-mm lobulated nodule in the left anterior mediastinum. Paraganglioma and carcinoid were suspected. Paraganglioma was excluded through a careful examination. The intraoperative findings showed the tumor to be hemorrhagic, and the surface was red in tone. The tumor was thus suspected of being hemangioma. The phrenic nerve went through surface of the tumor, but we considered it benign, so the phrenic nerve was preserved, and the tumor was resected. **Case 2.** A 64-year-old man was found to have an enlarged left mediastinal shadow at a medical examination. Chest computed tomography showed a 60-mm nodule in the left anterior mediastinum and poor contrast effect. Thymoma was suspected, and extended thymectomy was performed. Combined resection of the left phrenic nerve was performed because the nerve was involved with the tumor. The transmanubrial approach was required due to adhesion between the left brachiocephalic vein and the tumor. **Conclusion.** Mediastinal cavernous hemangioma presents with a variety of image findings, and a precise preoperative diagnosis can be quite difficult. However, cavernous hemangioma is an important differential diagnosis of mediastinal tumor.

(JJLC. 2021;61:171-176)

KEY WORDS — Cavernous hemangioma, Mediastinal tumor

Corresponding author: Kei Miyoshi.
Received August 11, 2020; accepted January 14, 2021.

要旨 — **背景.** 縦隔に発生する血管腫は比較的稀であり、全縦隔腫瘍の0.5%以下とされている。**症例 1.** 72歳、女性。健診で異常陰影を指摘され、CTで前縦隔左側に27 mmの分葉状腫瘤を認め、造影で強く均一に増強され、傍神経節腫やカルチノイドが疑われた。精査により、傍神経節腫が否定でき、手術を行った。術中所見では腫瘍は易出血性、赤色調で血管腫が疑われた。横隔神経は腫瘍表面付近を貫通していたが、腫瘍・胸腺の一部を切

開して、神経を温存し、腫瘍を摘出した。**症例 2.** 64歳、男性。検診で左縦隔陰影の拡大を指摘された。CT、MRIにて前縦隔に造影効果に乏しい60 mmの腫瘤性病変を認め、胸腺腫の疑いで、拡大胸腺腫瘍摘出術を行った。左横隔神経は腫瘍の内部を走行しており、温存は困難と判断し、合併切除した。腫瘍は左腕頭静脈と強い癒着を認め、安全な切除のためにtransmanubrial approachが必要であった。**結論.** 縦隔海綿状血管腫は多様な画像

¹九州大学大学院臨床・腫瘍外科；²労働者健康安全機構九州労災病院外科；³社会医療法人陽明会小波瀬病院呼吸器外科；⁴九州大学大学院医学研究院形態機能病理学。

論文責任者：三好 圭。
受付日：2020年8月11日，採択日：2021年1月14日。

所見を呈する。術前診断は困難であり、確実な完全切除が必要である。

索引用語——海綿状血管腫，縦隔腫瘍

背景

縦隔発生の血管腫は比較的稀で、全縦隔腫瘍の0.5%以下とされる。¹今回我々は、傍神経節腫や胸腺腫との鑑別が困難で、画像診断において異なる様相を呈する縦隔海綿状血管腫の2例を経験したので報告する。

症例

症例1：72歳，女性。

主訴：胸部X線異常。

現病歴：201X年健康診断時に胸部X線で異常陰影を指摘，前医CTで前縦隔腫瘍を指摘された。手術目的で紹介となった。

既往歴，身体所見：特記事項なし。

検査所見：CEA，シフラ，SCC，ProGRP，NSE， β -HCG，AFPは正常範囲。

胸部X線：左縦隔に境界不明瞭な腫瘤状陰影を認めた。

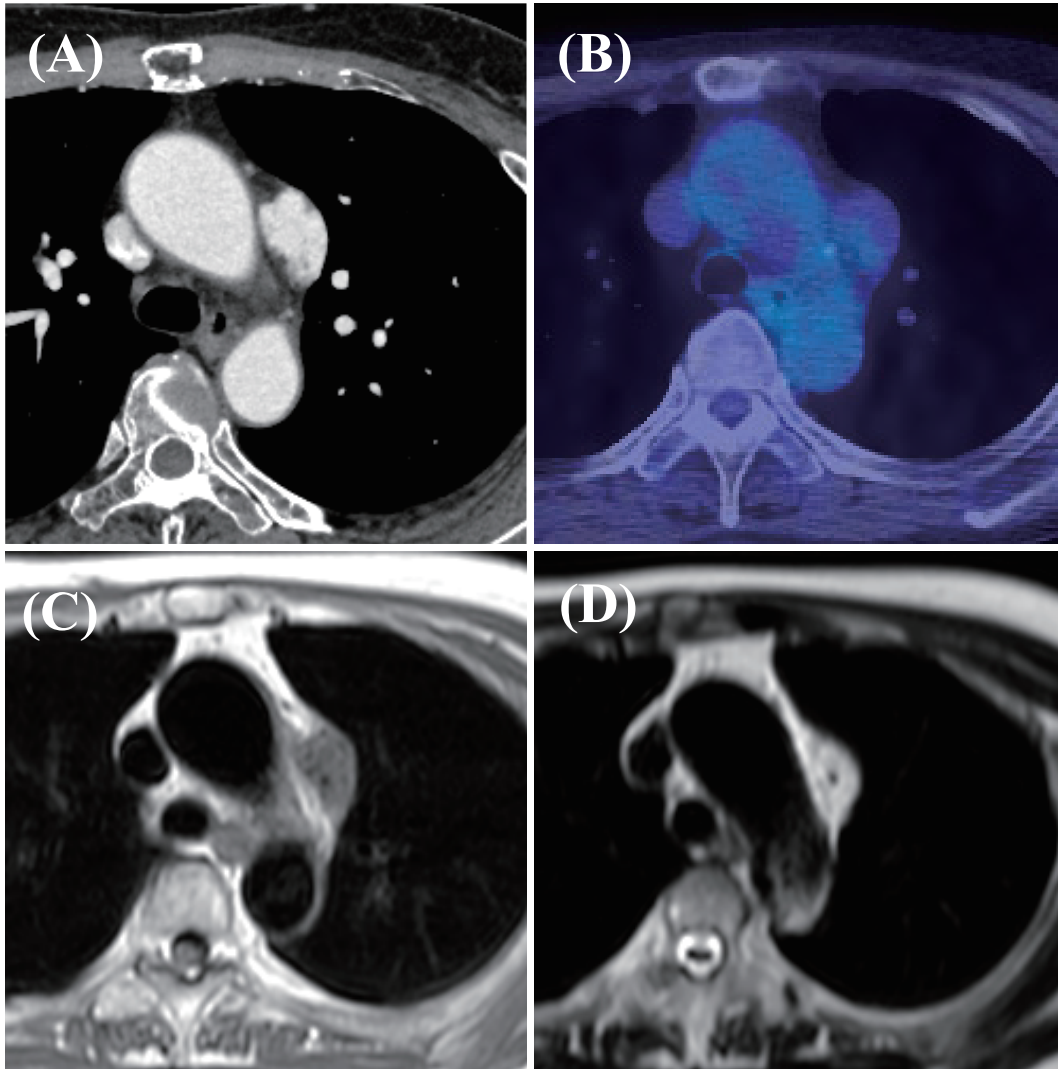


Figure 1. Chest CT shows a homogeneous enhanced tumor in the upper mediastinum (A). PET-CT shows a mild accumulation in the mediastinal tumor (B). Enhanced chest MRI shows iso-signal intensity with muscle on T1WI (C) and high signal intensity on T2WI (D). The flow void sign is also detected.

胸部 CT：前縦隔左側に 27 mm 大の分葉状腫瘤を認め、造影で動脈同等に強く均一に増強され、遅延相で wash out された。非常に強く増強され、傍神経節腫やカルチノイドが疑われ、鑑別として血管腫や胸腺腫の可能性が考えられた (Figure 1A)。

PET-CT：腫瘤に一致して FDG の軽度集積 ($SUV_{max}=1.62$) を認め、胸腺腫や血管腫として説明可能。胸腺カルチノイドは、FDG 異常集積を示す報告が多く、否定的。播種や遠隔転移を疑う集積は認めなかった (Figure 1B)。

MRI：33 mm の腫瘤は、T1WI で筋肉と等信号、T2WI で高信号を呈し、ADC は高値。造影 dynamic study では早期から急峻に強く増強された。胸腺腫や神経原性腫瘍が疑われたが、増強が強く、腫瘤内に flow void を認め、傍神経節腫や血管腫が鑑別となった (Figure 1C, 1D)。

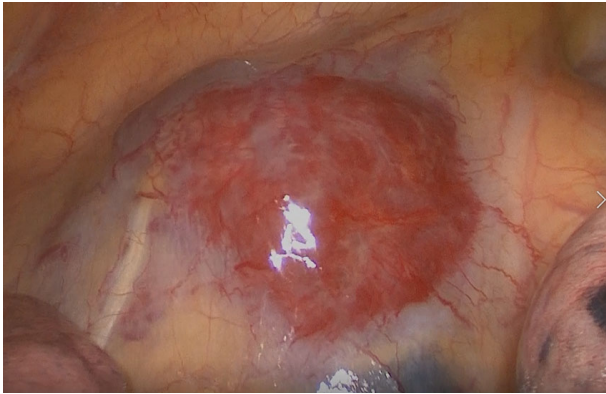


Figure 2. The intraoperative view. The surface of the tumor is red in tone.

MIBG シンチ：腫瘤に一致した RI の集積は認めなかった。

精査が行われ、血中・尿中カテコラミン、尿中メタネフリンは正常範囲、MIBG シンチ陰性で、傍神経節腫は否定的であった。それ以上の診断確定は困難で、手術の方針となった。術前診断は、中縦隔付近で造影効果が高く、典型的な胸腺腫より血管腫が疑われた。

手術所見：胸骨正中切開は過大侵襲と考え、胸腔鏡下に左胸腔よりアプローチした。腫瘍は中縦隔付近で、仰臥位より側臥位の方が操作が容易と判断した。腫瘍は表面赤色調で肉眼的にも血管腫などの良性腫瘍を疑った。横隔神経は、腫瘍表面よりやや深い部分を貫通していた。腫瘍は易出血性だが、浸潤傾向は認めなかった。縦隔胸膜および腫瘍の一部を剥離、切開し、神経の貫通部分を開放して横隔神経を温存した (Figure 2)。同様の理由で術中迅速組織診や閉胸時の洗浄細胞診は行わなかった。

切除標本：腫瘍の断面は暗赤色で古い血液様であった。

病理組織所見：内皮細胞に囲まれた大小の管腔が存在し、管腔内には赤血球が含まれ、海綿状血管腫の診断 (Figure 3A, 3B)。

経過良好で退院。術後、現在まで再発は認めていない。
症例 2：64 歳、男性。

主訴：胸部 X 線異常。

現病歴：201X 年検診の胸部 X 線にて左縦隔陰影の拡大を指摘。精査の CT、MRI で前縦隔に 6 cm 大の腫瘤性病変を認め、紹介となった。

既往歴：高血圧、うつ病。

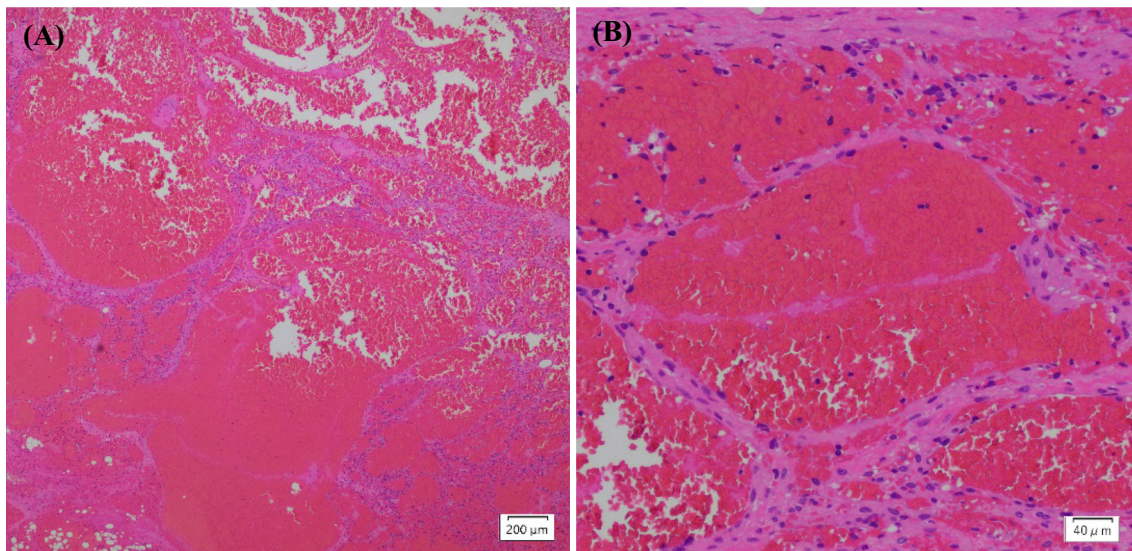


Figure 3. The microscopic appearance shows various-sized dilated vascular spaces lined with flattened endothelial cells and filled with blood cells. The pathological diagnosis is mediastinal cavernous hemangioma (hematoxylin and eosin stain (A) $\times 40$, (B) $\times 200$).

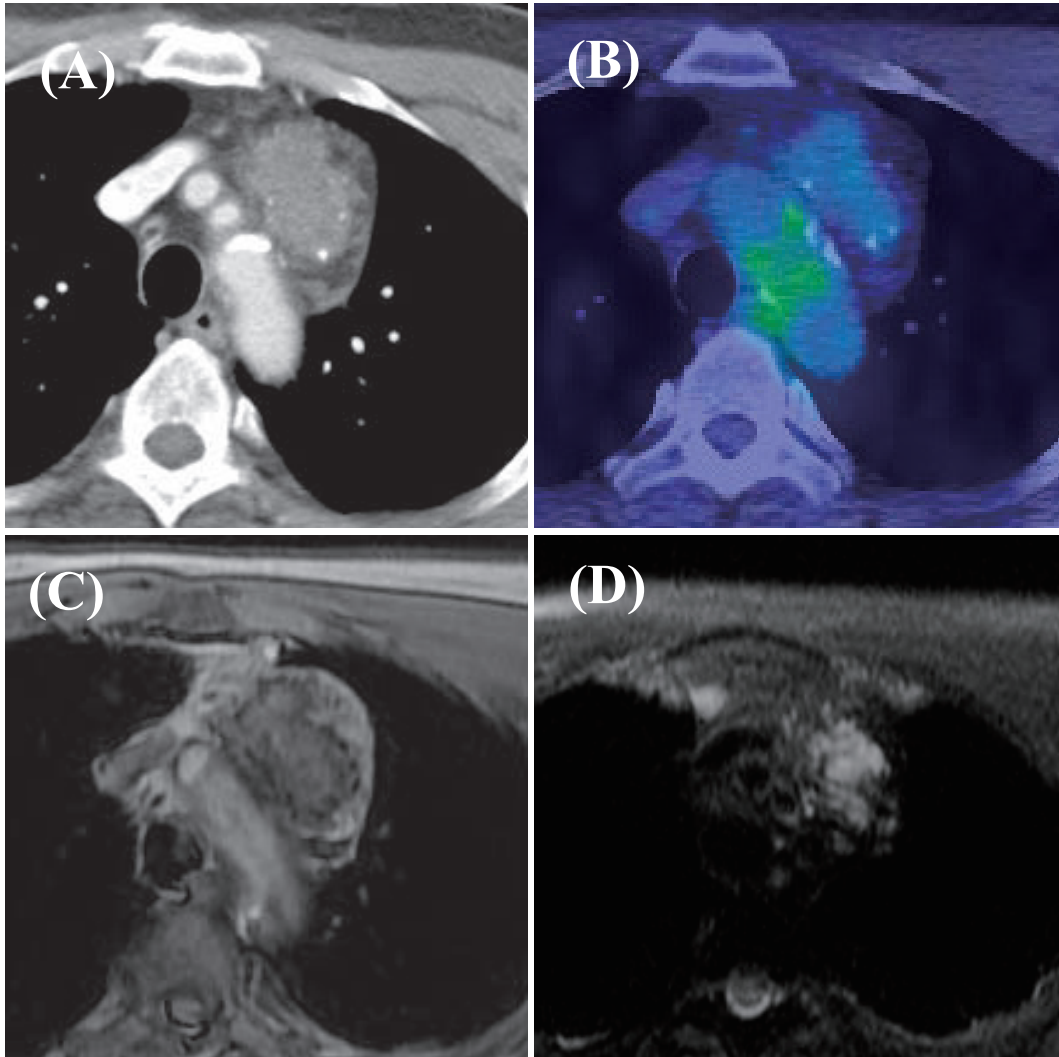


Figure 4. Chest CT shows a heterogeneous enhanced tumor in the upper mediastinum (A). PET-CT shows a mild accumulation in the mediastinal tumor (B). Enhanced chest MRI shows low signal intensity on T1WI (C) and low to mild high signal intensity on T2WI (D). Enhancement on MRI is heterogeneous.

身体所見：特記事項なし。

検査所見（血液検査）：CEA, β -HCG, AFP, sIL-2R は正常範囲。抗 Ach 受容体抗体陰性。

胸部 X 線：左縦隔に境界不明瞭な腫瘤状陰影を認めた。

胸部 CT：前縦隔左側に 6 cm 大の内部不均一で境界明瞭な腫瘤像を認めた。内部に隔壁様の低吸収が疑われ、石灰化が散見。周囲の脂肪織には淡い濃度上昇や脈管様の軟部陰影を認めた (Figure 4A)。

PET-CT：腫瘤に一致して軽度 FDG 集積 (SUV_{max}=2.12) を認め、胸腺腫や血管腫が疑われた (Figure 4B)。

胸部 MRI：腫瘤性病変は T1WI で低信号、T2WI で低～軽度高信号を呈した。造影後は不均一な増強効果を

呈し、拡散制限は明らかではなく、胸腺腫が疑われた (Figure 4C, 4D)。

手術所見：胸腺腫を疑い、拡大胸腺腫瘍摘出術を行った。左胸腔から胸腔鏡で観察すると、左横隔神経は腫瘍尾側で同定できたが、腫瘍の内部を走行しており、剥離・温存は困難と判断し、左横隔神経は合併切除の方針とした (Figure 5)。切除前の術中迅速診断は、播種を懸念して行わなかった。胸骨縦切開を行うと、腫瘍は胸腺左葉に 6 cm 大の腫瘤として存在し、周囲組織と強く癒着していた。左腕頭静脈末梢側は剥離困難で、視野不良、出血のリスクが高く、transmanubrial approach を行った。左腕頭静脈をテーピングした上で、腫瘍の剥離を行うと静脈の外膜は肉眼的に保たれており、浸潤はないと判断

した。静脈合併切除は行わず、縦隔腫瘍を摘出した。

切除標本：胸腺左葉に6 cm 大の弾性硬の腫瘤を認め、断面は内部に血腫を認めた。

病理組織所見：成熟型脂肪組織に囲まれて、結節性に集簇した大小の拡張した血管構造がみられ、内部には血液や静脈石を認め、薄壁性ないし線維性の壁を伴っていた。海綿状血管腫の診断 (Figure 6A, 6B)。

術後経過は良好で退院。術後1週間頃より左横隔神経麻痺を認めたが、呼吸状態は良好なため横隔膜縫縮などは行わなかった。術後1か月のCTで左S¹⁰の一部に無

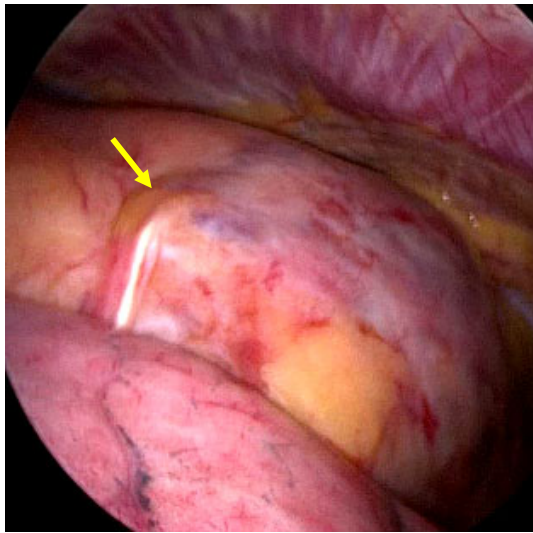


Figure 5. The intraoperative view. The phrenic nerve is involved in the tumor.

気肺を認めたが、術後半年のCTで無気肺は改善していた。現在まで再発は認めていない。

考 察

血管腫は臨床的には海綿状血管腫、蔓状血管腫、毛細血管腫に分類され、このうち海綿状血管腫の組織学的所見の特徴は、血液に富んだ大小不整に拡大した平滑筋壁を伴わない増生血管の集合である。血管腫全体では頭頸部での発生が40%を占めるが、海綿状血管腫は頭頸部、上下肢、躯幹にほぼ同等に発生している。²しかし、縦隔腫瘍に占める血管腫の発生頻度は少なく、³⁴前縦隔腫瘍の約0.4%にすぎない。儀賀らによる縦隔発生の血管腫33例の検討では、男性19例、女性14例、年齢は4か月から72歳、発生部位が前縦隔が19例、後縦隔が14例であり、⁵性別、年齢などに一定の傾向は認め難かった。

縦隔血管腫の術前診断は造影CT、MRIともに確実な所見に乏しく、診断困難とされており、術前診断がつかずに手術されることが多い。造影CTでは、循環遅延や腫瘍内部の血管内腔の血栓形成のため、造影効果は乏しいことが多いとの報告があり、^{6,7}本症例2は内部不均一で造影効果が乏しかった。一方、症例1では造影効果が非常に強く均一で、血管豊富な腫瘍が想定され、血管腫などとともに傍神経節腫が鑑別にあがった。

血管腫のMRI所見についてはSchurawitzkiらの報告ではT1、T2とも内部は不均一であり、出血の局在であるとしている。⁸鶴らはT1WIで筋肉に比して高信号、T2WIでは著明な高信号を示し、Gd-DTPAで良好にT1WIで造影された⁹と報告しているが、儀賀らの報告で

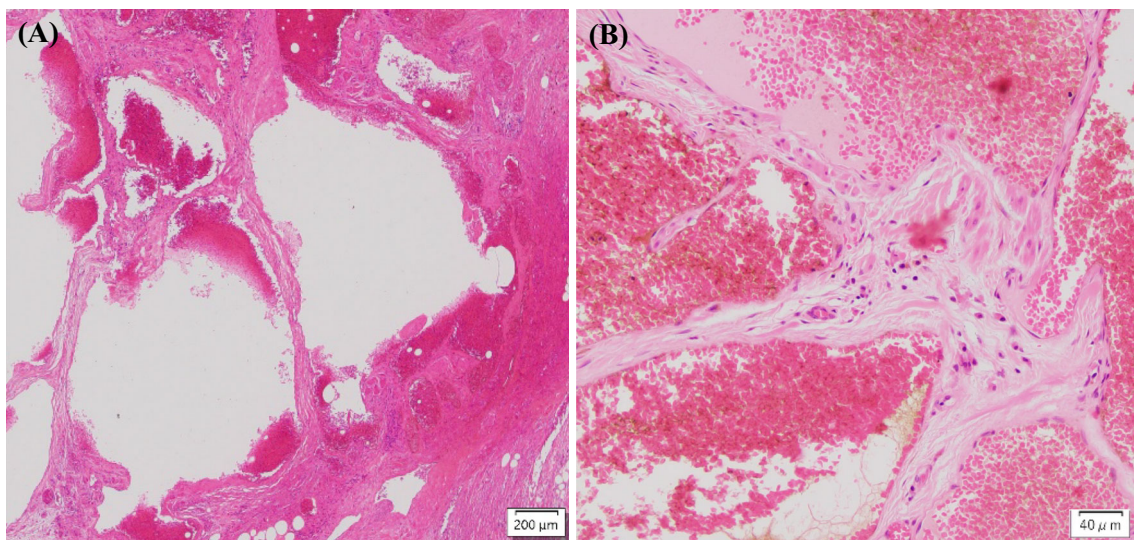


Figure 6. The microscopic appearance shows the proliferation of small vessels and fibrous tissue. Multiple cavities are covered with linear endothelial cells and filled with red blood cells. The pathological diagnosis is mediastinal cavernous hemangioma (hematoxylin and eosin stain (A)×40, (B)×200).

は、T1WIで低信号、Gd-DTPAで造影効果はみられなかった⁵としており、過去の報告もMRI所見については一定していない。症例1ではT1WIで筋肉と等信号、T2WIで高信号、症例2ではT1WIで低信号、T2WIで低～軽度高信号を呈しており、胸腺腫との鑑別は困難であった。また症例1ではflow voidを認め、腫瘍内の血管の存在を疑わせる特徴的な所見であった。しかし、胸腺腫などの疾患は否定的であるが、血管腫のみに特徴的な所見ではないため、症例1ではCT所見と合わせて傍神経節腫の除外診断が必要であった。MRI所見の症例毎の多様性は血管腫内部の構造、嚢状に拡大した内腔の有無、内部の血栓化、腫瘍内出血の局在が症例毎に異なるため¹⁰と考えられ、MRIでも海綿状血管腫に特有の所見を指摘することは困難である。

海綿状血管腫は単純写真やCTにおいて、腫瘍内部の小石灰化像（静脈石）が特徴的とされるが、10%程度である。¹¹ 症例2では腫瘍に石灰化を認めたが、同様に石灰化を有する胸腺腫との鑑別は最後まで困難であった。

症例1、症例2の共通点は無症状であること、画像検査に関してはPET-CTの集積が軽度であることのみであり、画像所見、術中所見は大きく異なっていた。

海綿状血管腫の治療は外科的切除が原則であり、鈴木らは良性腫瘍であっても完全切除のためには横隔神経の合併切除が必要なことがあると報告している。¹² Cohenらは不完全切除でも数年は残存腫瘍の拡大を認めなかったことから、不完全切除の選択肢¹を述べているが、症例2のように胸腺腫との鑑別が困難な症例は、不完全切除を選択してまで横隔神経温存を優先することは、困難である。

症例1では術中所見から良性腫瘍、特に血管腫の可能性を疑い、横隔神経を温存しつつ、腫瘍を切除した。症例2では胸腺腫を疑い、横隔神経を合併切除した。明らかな浸潤は認めなかったため、左腕頭静脈合併切除は行わなかった。2症例とも外科的断端は陰性であるが、慎重な経過観察が必要と思われる。

なお、血管腫の術中病理診断そのものは容易と考えられるが、本症例では行っていない。血管腫に対する切除生検は出血のリスクが高く、特に症例2のように大きな

腫瘍では出血が容易に止められない可能性があり、その判断は慎重に行うべきである。

結 論

縦隔海綿状血管腫は血栓形成の有無など、種々の理由により多様な画像所見を呈する。術前診断は困難であり、確実な完全切除が必要である。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

本論文の要旨は第60回日本肺癌学会学術集会で発表した。

REFERENCES

1. Cohen AJ, Sbaschnig RJ, Hochholzer L, Lough FC, Albus RA. Mediastinal Hemangiomas. *Ann Thorac Surg*. 1987;43:656-659.
2. 本木誠二. 現代外科学体系. 東京：中山書店；1968:99-107.
3. 正岡 昭, 山口貞夫, 森 隆, 安光 勉, 姜 臣国, 竹村政通, 他. 縦隔外科全国集計. 日胸外会誌. 1971;19:1289-1300.
4. 寺松 孝, 山本博昭, 伊藤元彦. 縦隔腫瘍に関する全国集計—第1編 縦隔腫瘍全国集計—. 日胸外会誌. 1976;24:264-269.
5. 儀賀理暁, 河野光智, 桑原克之, 田島敦志, 澤藤 誠, 渡辺真純, 他. 頸部に進展した、上縦隔発生海綿状血管腫の1例. 気管支学. 1999;21:22-26.
6. 藤原敏典, 河野佳宜, 善甫宜哉, 中村勝昭, 江里建輔, 毛利 平. 縦隔血管腫の1例. 日臨外会誌. 1985;46:601-604.
7. 近間英樹, 田中康一, 岡田秀司, 葉玉哲生, 内田雄三. 縦隔良性血管腫の1手術例. 日呼外会誌. 1993;7:131-136.
8. Schurawitzki H, Stiglbauer R, Klepetko W, Eckersberger F. CT and MRI in Benign Mediastinal Haemangioma. *Clin Radiol*. 1991;43:91-94.
9. 鶴 博生, 松浦隆志, 土橋一仁, 堀内芳夫, 岡 武志. 後縦隔に生じた海綿状血管腫の1例. 臨床放射線. 1995;40:265-268.
10. 白井俊純, 矢野 真, 川口 悟. 前縦隔に発生した海綿状血管腫の1例. 日呼外会誌. 2001;15:136-139.
11. Davis JM, Mark GJ, Greene R. Benign blood vascular tumors of the mediastinum. Report of four cases and review of the literature. *Radiology*. 1978;126:581-587.
12. 鈴木 隆, 堀 豪一, 鈴木秀一, 森保幸治, 千葉正博, 五味 明, 他. 小児の前縦隔に発生した海綿状血管腫の1例. 胸部外科. 1991;44:1027-1029.