

後腹膜に発生した吻合血管腫の1例

熊本大学大学院生命科学研究部 泌尿器科学講座

高橋 えりか*・倉橋 竜磨・穴見 俊樹・元島 崇信・村上 洋嗣

矢津田 旬二・神波 大己

(受付日: 2025 年 1 月 9 日, 受理日: 2025 年 2 月 18 日)

抄録:

症例は 69 歳男性。後腹膜左側に嚢胞性腫瘍があり数年前より前医にて経過観察中であつた。増大傾向を示したため, X-2 年前医外科にて後腹膜腫瘍に対して腹腔鏡下後腹膜腫瘍切除術が施行されたが, 術中腫瘍表面から大量出血をきたし切除中止となった。その後腫瘍が増大傾向 (1 cm/1 年間) を示したため, X 年に改めて切除目的に当科紹介された。造影 CT にて左腎静脈背側に 52 × 49 × 53 mm 大の辺縁のみ造影効果のある腫瘍を認めた。開腹後腹膜腫瘍摘除術を施行したところ, やはり腫瘍周囲や癒着した腎静脈から大量出血を認めたが病巣を摘除し得た。病理組織診断は吻合血管腫 (anastomosing hemangioma) であつた。

吻合血管腫は組織学的に血管肉腫と類似する非常に稀な良性血管腫瘍であり, 本症例報告時点で後腹膜における吻合血管腫の発生は 19 例が報告されているのみである。病理学的にも診断は難しく, 本症例も血管筋脂肪腫等が鑑別にあがつたが, 各種免疫染色の結果, 診断に至った。画像診断によって偶然に発見されることが多いが, 認知度の低さから, しばしば血管肉腫などの悪性腫瘍と診断され摘除手術が施行されている。本症例も画像所見から術前の鑑別に難渋したが, 増大傾向と患者本人の希望から手術に至った。後腹膜への発生が稀な吻合血管腫について文献的考察を加え報告する。 (西日泌尿, 87: 248-253, 2025)

キーワード: 吻合血管腫, anastomosing hemangioma, 後腹膜腫瘍, 毛細血管腫

緒 言

吻合血管腫は非常に稀な良性血管腫で, 毛細血管腫の特殊型として 2009 年に初めて分類された。軟部組織, 肝臓, 結腸, 皮膚など様々な部位に発生するが, 後腹膜に発生したものは少数の報告のみにとどまる¹⁾。我々は原発不明の後腹膜腫瘍に対し, 手術を施行したところ後腹膜に発生した吻合血管腫であつた症例を経験したため, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 69 歳男性

主訴 後腹膜腫瘍の増大

既往歴 高血圧, 左足骨折, C 型肝炎治療後

内服薬 マニジピン塩酸塩, アジルサルタン, ジアゼ

パム, テプレノン, プロチゾラム

現病歴 数年前より前医にて後腹膜左側に嚢胞性腫瘍を指摘。増大傾向を示したため, 2 年前に前医外科にて腹腔鏡下後腹膜腫瘍切除術が試みられたが, 腫瘍表面から大量出血をきたしたため摘除断念された。その後再び経過観察されていたが 1 年間で 1 cm 程度の増大傾向を示したため, X 年当科紹介受診となった。

来院時現症 身長 176 cm, 体重 83 kg, 体温 36.5 °C

明らかな身体所見はなし

血液検査 WBC 5800/ μ l, RBC 509 × 10⁴/ μ l, Hb 16.1 g/dl, PLT 214 × 10³/ μ l, TP 7.9 g/dl, Alb 5.1 g/dl, BUN 24.3 mg/dl, Cre 0.28 mg/dl, AST 19 U/l, ALT 16 U/l, LDH 168 U/l, γ -GTP 19 U/l, Na 141 mmol/l, K 4.5 mmol/l, Cl 103 mmol/l, CRP 0.08 mg/dl

画像所見 腹部造影 CT: 左後腹膜腔に 52 × 49 × 53 mm 大の腫瘤性病変。1 年前の CT (約 40 × 48 × 47

* 〒 860-8556 熊本市中央区本荘 1-1-1
TEL 096-344-2111

mm 大) より増大傾向を示す。辺縁部は動脈相で濃染しているが内部はほぼ造影効果は認めず。腫瘍は左腎動静脈, 十二指腸水平脚と近接している (Fig. 1a)。

MRI: T2 強調像にて高信号, T1 強調像に低信号を示す。ADC 高値であることから内部は液体貯留が考えられ, 嚢胞変性や壊死性変化を疑う。術後変化のため血行支配が同定困難であった (Fig. 1b)。

手術所見 開腹後後腹膜腫瘍摘除術を施行した。前医にて同部位の手術歴があり, 癒着した腸管を大きく脱転する必要があったため腹部正中切開にてアプローチした。手術時間は9時間56分, 出血量は6,188 mlであった。再手術による腹腔内の癒着と, 前回手術の出血による腫瘍周囲の高度な癒着と異常血管が発達していたことにより剥離に難渋した。やはり癒着組織剥離の際に腎静脈の分枝や腫瘍周囲の異常血管から激しい出血を認めたが, 腫瘍を先に摘出した後に入念な止血操作を行い止血を得た (Fig. 2ab)。

病理所見 HE 染色: 出血性変化の強い柔らかい脂肪組織に覆われた腫瘍性病変。腫瘍自体は 30 × 20 mm 大で周囲脂肪組織との境界はやや不明瞭 (Fig. 3a)。組織の大部分は増生した血管と成熟脂肪細胞からなり, 密集した毛細血管の内皮細胞は単層構造でありわずかに核の種大を認める (Fig. 3b-d)。形態としては血管筋脂肪腫も鑑別に挙がる。

免疫染色: Desmin や α SMA といった筋原性マーカーは陽性であったが, 通常血管筋脂肪腫で陽性となる

Melan A, HMB45 などのメラノサイトマーカーがいずれも陰性であることから否定的と考えられた。

最終診断: 吻合血管腫 (anastomosing hemangioma) となった。

術後経過 術中出血量は多かったが術後合併症は認めることなく経過し, 術後11日目で退院となった。術後半を経過したが腫瘍再発は認めず経過している。

考 察

吻合血管腫は非常に稀な良性血管腫であり, 毛細血管腫の特殊型としてこれまでに様々な実質臓器や軟部組織などでの発生が報告されている²⁾。泌尿器科 (後腹膜) 領域へ発生したものは2009年に初めて Montgomery ら¹⁾ によって分類され提唱された。血管が通常の毛細血管網を介さずに異常に吻合または連結しているため同名称がついたが, 現在では動静脈奇形 (AVM: Arteriovenous Malformation) の一種とも考えられている。

吻合血管腫は泌尿器科領域では腎臓に発生した報告が多いが, Montgomery らによって提唱される以前は, 血管肉腫などと報告されていたと考えられる。実際に血管肉腫と診断された中で経過良好であったものの一部は吻合血管腫であった可能性が指摘されている¹⁾。吻合血管腫は軟部組織, 肝臓, 結腸, 膀胱, 皮膚など様々な部位に発生するが, 後腹膜腔に発生したものは自験例を含めて19例が報告されているのみであった²⁾。無症状なこ

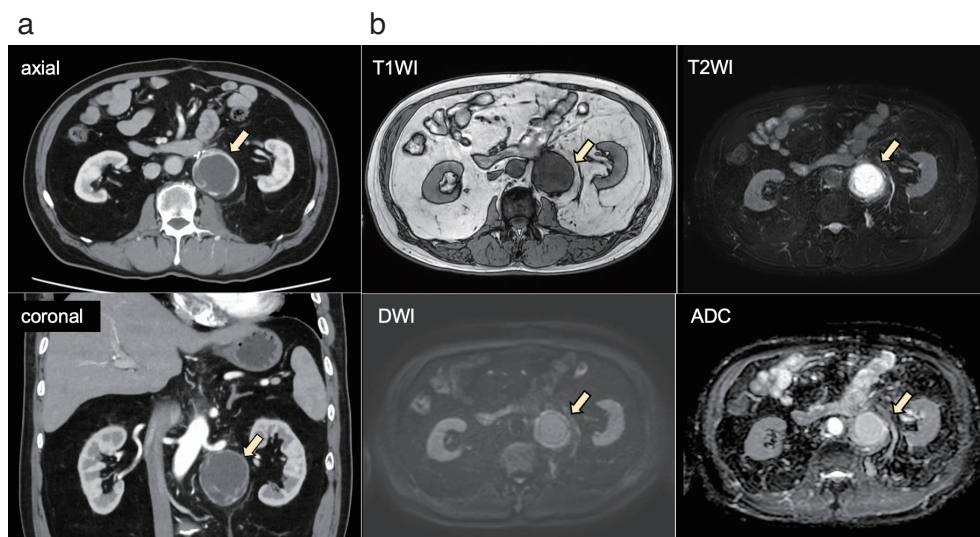


Fig. 1 (a) A 52 × 49 × 53 mm retroperitoneal tumor. The peripheral area is enhanced in the arterial phase, but no contrast effect is observed inside. The tumor is close to the left renal artery and vein and the duodenum. (b) T2WI high-, T1WI low- and ADC high-intensity lesion. Fluid retention is suspected inside the tumor.

とが多く検査で偶然見つかることが多いとされているが、発生部位や大きさ等によっては血尿や腹痛を契機に発見された報告もある¹⁾。これまで報告された吻合血管腫のほとんどが単発病変であるが、両側性や多発性に病変を生じることもあるとされる^{1,3)}。

病理組織学的な特徴として、組織構造的には血管を伴

う小葉状構造を示し、異型性には乏しい血管内皮細胞と hobnail 内皮細胞を含むことが挙げられる^{1,4)}。内皮細胞の多層化はみられず、血管内腔には血栓形成も認められることが典型的とされており¹⁾、本症例でも同様の所見が確認された。局所的壊死やカポジ肉腫で見られるようなヒアルロン酸球が見られることもあり、また髄外造

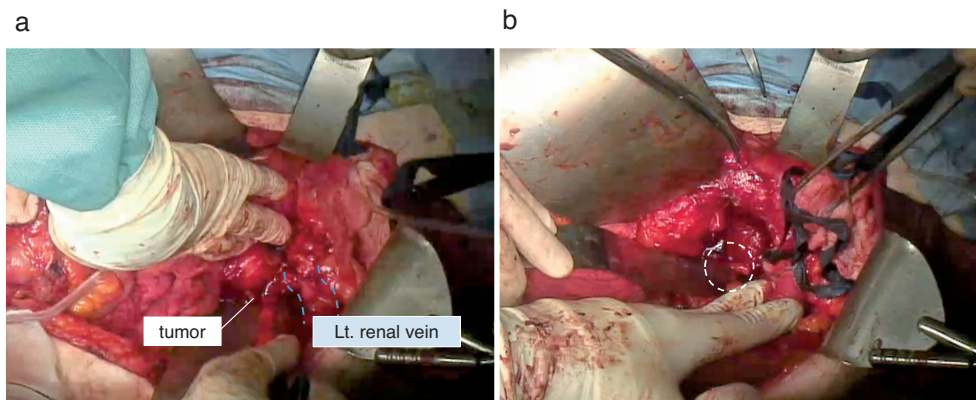


Fig. 2 Intraoperative findings.

- (a) There were strong adhesions around the tumor, and the tumor was surrounded by blood vessels branching from the renal vein.
- (b) The area indicated by the dotted circle represents the site where the tumor was removed.

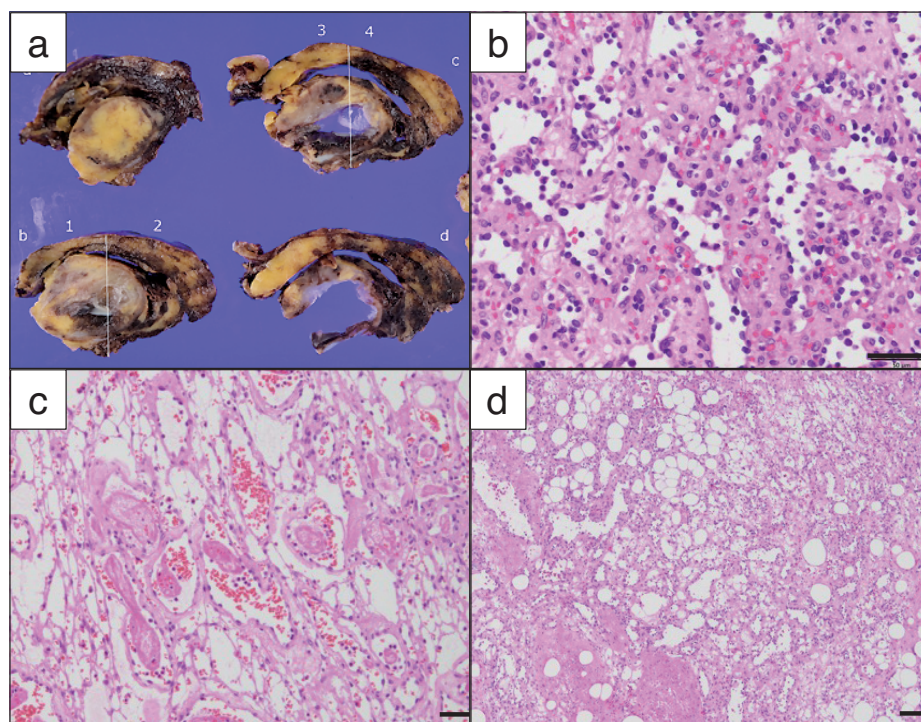


Fig. 3 (a) A mass lesion covered by soft adipose tissue with strong hemorrhagic changes. The tumor itself is 30 × 20 mm, and the border with the surrounding fat tissue is unclear. (b) Vascular endothelial cells show mild nuclear enlargement. (c) Fibrin thrombus is seen in the lumen of the vessel. (d) The surrounding tissue is a mixture of blood vessels and adipose tissue.

scale bar 50µm

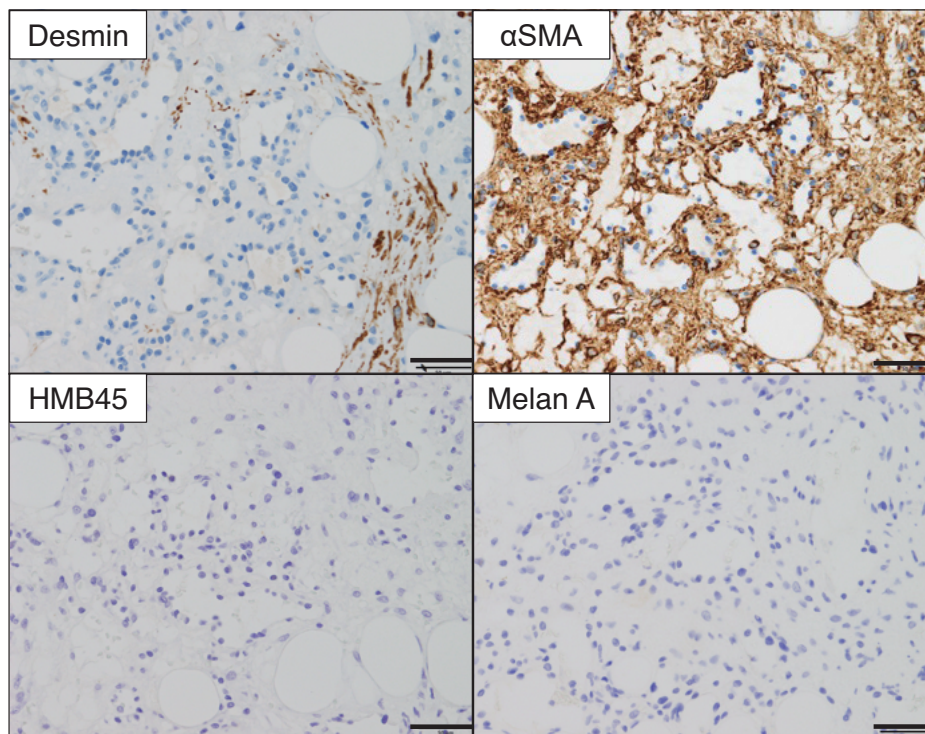
血が認められることもあるなどその病理学的特徴は多岐にわたる¹⁾。免疫組織化学的検査は施行されることが少ないようだが、CD34, CD31, FVIIIは陽性の症例が多いと報告されている²⁾。本症例ではこれらは施行していないが、鑑別診断として血管筋脂肪腫が挙げられたためDesminや α SMAといった筋原性マーカーに加え、Melan AやHMB45などのメラノサイトマーカーについて検討を行い、いずれも陰性であったことから血管筋脂肪腫でなく吻合血管腫の診断に至った (Fig. 4)。

組織学的な非定型性を反映して画像上も多彩な像を呈するため、画像的特徴として診断の決め手となるものは未だ定まっていない。造影CTでは早期相で濃染する境界明瞭な腫瘍として認められることが多いとされる⁴⁾。本症例では腫瘍辺縁は境界明瞭で造影効果を認めたが、腫瘍内部には一部造影効果が不均一な部位があり、後の病理所見からこの不均一部分は血管腫を形成する血管内に生じた血栓、内部の嚢胞性変化だけでなく脂肪成分により部分的に造影不良として描出されていたことが明らかとなった。既出報告には充実性の腫瘍成分の中に嚢胞性を呈したとする報告や、脂肪組織や石灰化などの成分を認めたとする報告があり、本症例の病理所見と矛盾しないと考える⁵⁾。MRI検査を施行された報告例は多くは

ないが、T1WIで低信号、T2WIで等信号～高信号、DWIでは等信号～高信号を呈するとされ²⁾、本症例のMRI所見も一致する。

本症例では画像所見からは傍神経節腫瘍等の良性疾患が考えられたが、増大傾向があることから悪性疾患を完全に否定できず、手術による摘出を施行した。腫瘍生検については前手術で大量出血していることもあり考慮しなかった。また摘除標本については嚢胞内の内容液の排出後であるため充実部分があるように見えるが、術前CTではほとんど嚢胞性の所見であり生検は禁忌と考えた。吻合血管腫に関する症例報告をみても、画像上悪性が否定できないことや発生母地の同定が困難であることから、治療は腫瘍切除術が施行されていることが多いようである⁵⁾。本症例では前医外科にて腹腔鏡下後腹膜腫瘍切除術が試みられたが、術中出血により手術が完遂されなかった既往があったため、今回術前に血管造影での腫瘍の血行動態の確認や血管塞栓術を考慮すべきであったかもしれない。ただ、前手術では静脈性の出血であったため術前の塞栓術はおそらく効果はなかったと考えられる。

吻合血管腫自体は良性疾患であり現在のところ再発の報告例はなく予後は良好とされる。最長で122カ月の



scale bar 50μm

Fig. 4 Based on the immunohistochemical results of Desmin (+), α SMA (+), HMB45 (-), and Melan A (-), angiomylipoma was excluded from the differential diagnosis.

フォローアップがなされているものもあるが再発・転移の報告はみられていない⁴⁾。

本症例は腎静脈、腎動脈と近接していたため剥離の際に出血をきたした。このような報告は多くないが、手術時に腫瘍とその周囲に血管病変があることが指摘された例や¹⁾、本症例と発生部位が酷似した毛細血管腫の手術時に、腫瘍周囲の癒着と血管増生のため易出血性を認めたという報告が本邦でもある⁶⁾。

吻合血管腫は特に泌尿器科（後腹膜）領域において稀な良性の血管腫瘍である。腫瘍の性質上、術前に確定診断を行うことは困難であるが、画像所見などから吻合血管腫を鑑別の一つとして事前に検討することができれば、術中のリスク回避や過剰な治療を防ぐことができるかもしれない。

結 語

後腹膜に発生した吻合血管腫の症例を1例経験した。画像診断による術前の鑑別が困難な稀な疾患であった。

文 献

- 1) Montgomery, E. and Epstein, J. I.: Anastomosing hemangioma of the genitourinary tract: a lesion mimicking angiosarcoma. *Am J Surg Pathol.* **33**: 1364-1369, 2009.
- 2) Xue, X. et al.: Imaging findings of retroperitoneal anastomosing hemangioma: a case report and literature review. *BMC Urol.* **22**: 1-5, 2022.
- 3) John, I. and Folpe, A. L.: Anastomosing hemangiomas arising in unusual locations: a clinicopathologic study of 17 soft tissue cases showing a predilection for the paraspinal region. *Am. J. Surg. Pathol.* **40**: 1084-1089, 2016.
- 4) Kryvenko, O. N. et al.: Anastomosing hemangioma of the genitourinary system: eight cases in the kidney and ovary with immunohistochemical and ultrastructural analysis. *Am. J. Clin. Pathol.* **136**: 450-457, 2011.
- 5) O'Neill, A. C. et al.: Anastomosing hemangiomas: locations of occurrence, imaging features, and diagnosis with percutaneous biopsy. *Abdom. Radiol. (NY).* **41**: 1325-1332, 2016.
- 6) 及川真亮・他：腎門部に発生した毛細血管腫の1例. *泌尿紀要.* **60**: 33-37, 2014.

ANASTOMOSING HEMANGIOMA ARISING IN THE RETROPERITONEUM: A CASE REPORT

ERIKA TAKAHASHI, RYOMA KURAHASHI, TOSHIKI ANAMI,
TAKANOBU MOTOSHIMA, YOJI MURAKAMI,
JUNJI YATSUDA AND TOMOMI KAMBA

Department of Urology, Faculty of Medicine, Kumamoto University, Kumamoto, Japan

Abstract :

A 69-year-old man had a cystic tumor in his left retroperitoneum and had been under observation by his previous doctor for several years. As the tumor had shown a tendency to increase in size, a laparoscopic retroperitoneal tumor resection had been attempted by the previous doctors, but the tumor surface had exhibited massive bleeding during the surgery and hence the resection was discontinued. Since the tumor subsequently continued to show a tendency to increase in size (1 cm/year), the patient was referred to our department. Contrast-enhanced CT revealed a 52 × 49 × 53 mm tumor on the dorsal side of the left renal vein with contrast enhancement only at the margin. Retroperitoneal tumor removal was performed. Again, massive bleeding was observed around the tumor and from the adhering renal vein, but the lesion could be removed. The histopathological diagnosis was anastomosing hemangioma. Anastomosing hemangioma is an extremely rare benign vascular tumor that histologically resembles angiosarcoma, and at the time of this case report, only 19 cases of the tumor in the retroperitoneum had been reported. Pathological diagnosis is difficult, and angiomyolipoma was considered as a differential diagnosis in this case, but the diagnosis was made as a result of various immunostainings. It

is often discovered incidentally through image diagnosis, but due to low awareness, it is often diagnosed as a malignant tumor such as angiosarcoma, and surgery is performed to remove it. In this case too, it was difficult to differentiate preoperatively based on imaging findings alone, but due to its enlargement and the patient's wishes, surgery was performed. (Nishinoh J. Urol. **87**: 248-253, 2025)

key words: anastomosing hemangioma, retroperitoneal tumor, capillary hemangioma
