

## ●画像診断

## Thoracic splenosis の1例

森 公介<sup>a,\*</sup>

要旨：症例は37歳，女性．発熱を主訴に受診し，右下葉の肺炎と左肺に限局した多発性の胸膜腫瘍，腹腔内の数個の結節陰影を認めた．既往歴に脾臓摘出術があり，splenosisを疑い<sup>99m</sup>Tc-スズコロイドシンチグラフィを施行したところ，これらに取り込みが認められ，thoracic splenosisおよびabdominal splenosisと診断した．本症は，左肺に限局する特徴的な臨床像と既往歴から疑いを持てば，適切な画像診断により比較的容易に確定診断が可能であり， unnecessaryな生検や胸腔鏡検査を含めた侵襲的検査を避けることができる．

キーワード：脾症，胸腔内脾症，腹腔内脾症

Splenosis, Thoracic splenosis, Abdominal splenosis

## 緒言

脾症 (splenosis) は，外傷や外科手術による脾損傷が原因となり，脾臓組織の一部が異所性自家移植を起こしたものである．しばしば各種腫瘍との鑑別が問題となるが，病歴に脾損傷や脾摘の既往歴が存在する本疾患の病態を認識して画像診断を行えば，ほとんどの症例において組織診断のための侵襲的検査を回避することができる<sup>1</sup>とされている．今回，交通外傷後20年目に肺炎を契機に発見された腹腔内脾症 (abdominal splenosis) を伴う胸腔内脾症 (thoracic splenosis) の1例を経験したので報告する．

## 症例

患者：37歳，女性．

主訴：2週間前から続く咳．

家族歴：特記事項なし．

既往症：18歳のとき交通外傷で脾臓摘出．以後今日まで胸部X線検査は受けたことがない．肺炎の既往なし．

現病歴：労働者健康福祉機構愛媛労災病院受診の2週間前から咳が続き，3日前から37.5℃の発熱が生じていた．初診時の胸部X線写真で右下葉および左上葉の陰影と，



図1 胸部正面写真．右下肺野に血管の不鮮明化を伴う淡い肺炎の浸潤陰影と，左上肺野に下部の境界が鮮明な肺野濃度の上昇領域を認める．左心陰影後部は境界不鮮明な濃度上昇があり，下肺血管が明瞭でない部分が認められる．

左心陰影に重なる陰影を認めた (図1)．また胸部CT画像にて右下肺の肺炎陰影 (図2) と，左肺に限局した複数の胸膜腫瘍，心膜腫瘍，横隔膜腫瘍を認めた (図3)．上腹部CT画像では左横隔膜上下に腫瘍が存在し，腹腔内にも複数の小腫瘍 (図4) が認められた．

現症：体温37.3℃，SpO<sub>2</sub> 97%，心拍数69/min，聴診上rales (-)，胸痛なし．

検査所見：初診時WBC 8,400/μl，Hb 13.3 g/dl，CRP 0.38 mg/dlであり，免疫グロブリンや，蛋白分画その他一般血液生化学検査に異常なく，末梢血塗末標本においても赤血球にはHeinz小体やHowell-Jolly小体は認めず，

連絡先：森 公介

〒792-8550 愛媛県新居浜市南小松原町13-27

<sup>a</sup>独立行政法人労働者健康福祉機構愛媛労災病院呼吸器内科

\*現 村上記念病院内科

(E-mail: moridesu@murakami-kinen.or.jp)

(Received 23 Apr 2013/Accepted 30 May 2013)

球状赤血球などの異常赤血球も認めなかった。

経過：肺炎に対して外来にて抗菌薬点滴を行うとともに、多発性腫瘍に対して精査を行った。右下肺の肺炎陰影は抗菌薬投与により完全に消失した。一方、左肺の胸

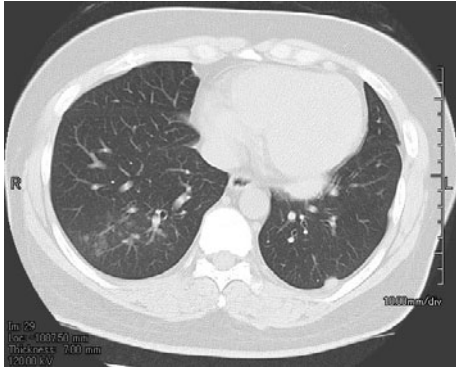


図2 胸部CT画像。右下葉の肺炎陰と、左胸腔内の心膜、壁側胸膜に腫瘍を認める。

膜腫瘍は多発性で左肺に限局しており、過去に腹部外傷による摘脾の既往があること、腹部にも複数の小腫瘍を認めることから splenosis を疑い、 $^{99m}\text{Tc}$ -スズコロイドシンチグラフィと、鑑別診断のためPET-CTも施行した。

PET-CTでは左背部の腫瘍にSUVmax 2.7の集積があり、後期像でも2.3と集積の増加は認められなかったが、 $^{99m}\text{Tc}$ -スズコロイドシンチグラフィ（図5）では左の胸膜腫瘍、心膜腫瘍、左上腹部腫瘍に一致して取り込みを認めた。また骨盤腔にも小さな取り込みが認められた。以上より thoracic splenosis および abdominal splenosis と診断でき、侵襲的な組織学的検査を避けることが可能であった。

## 考 察

脾症 (splenosis) の概念は1939年にBuchbinderら<sup>1)</sup>によって提唱された。外傷性脾損傷による脾摘出術後に再開腹した際に、腹腔内に遺残生着した脾組織を認め、外傷や外科手術による脾損傷が原因となり脾臓組織の一

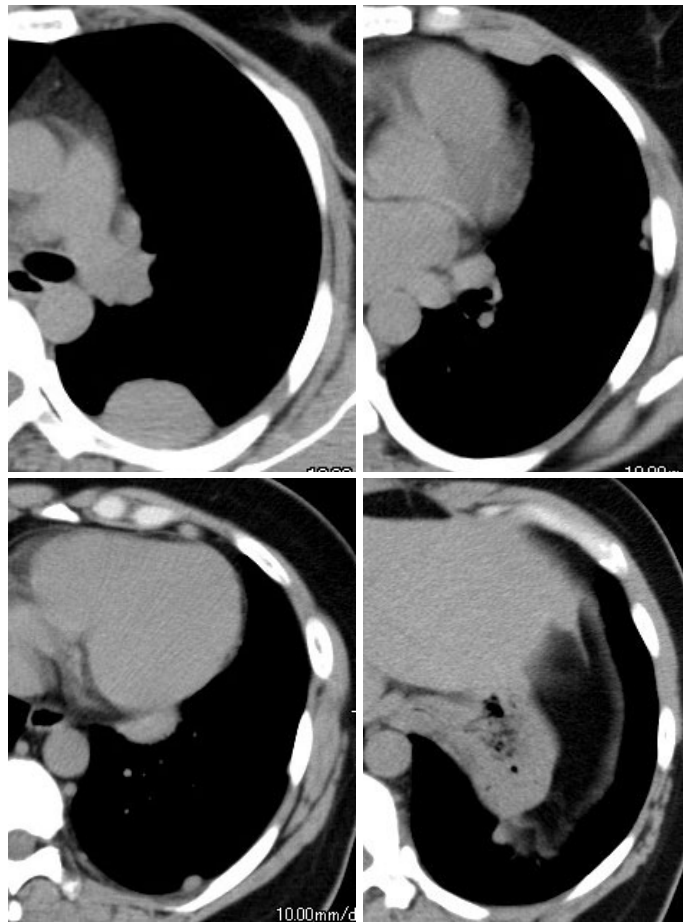


図3 胸部CT画像。左胸部において、気管分岐部の高さの4 cm 大の後部胸壁腫瘍、および前胸壁、後部心膜、側胸壁、横隔膜上に腫瘍を認める。

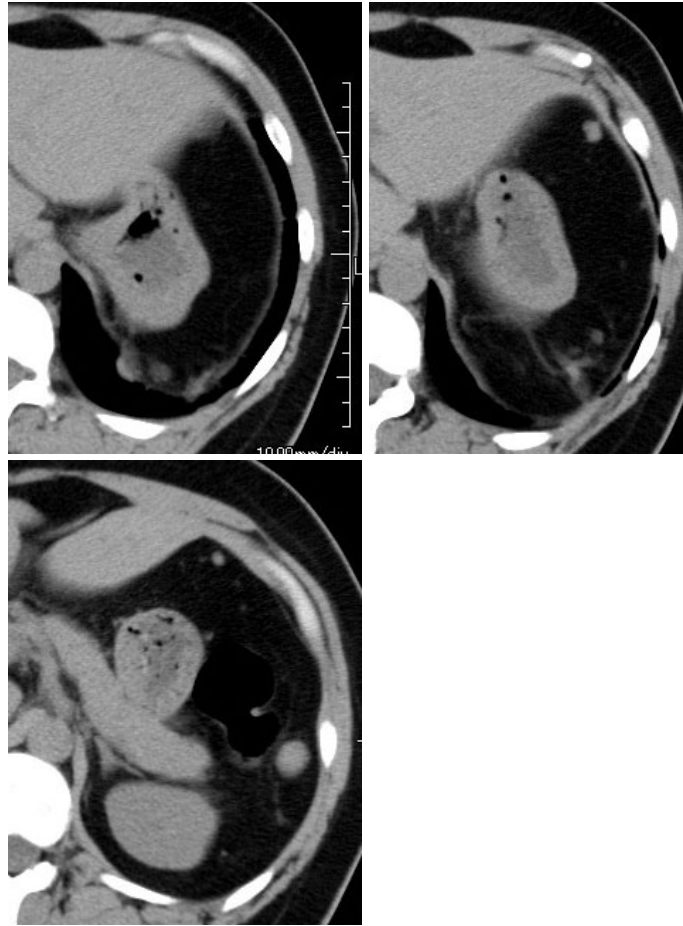


図4 上腹部 CT 画像. 正常な脾臓は認められない. 横隔膜をはさんで上下に腫瘤と, 腹腔内に複数の小腫瘤を認める.

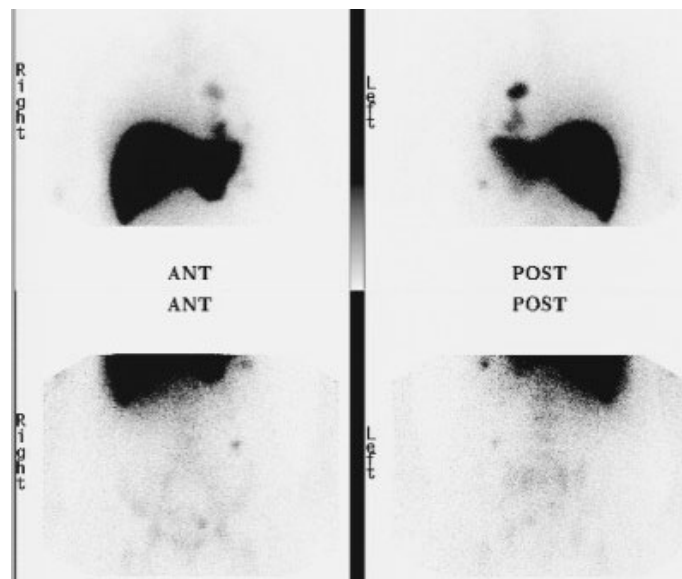


図5  $^{99m}\text{Tc}$ -スズクロイドシンチグラフィー. 図3, 4で認められた左肺の前後の胸壁腫瘤, 心膜腫瘤, 左上腹部腫瘤に一致して取り込みを認める. また当初 CT 画像で気づかなかった骨盤腔にも取り込みが認められた.

部が異所性自家移植を起こしたものとして、腹膜に多数の脾組織転移が起こる状態を脾症 (splenosis) と命名した<sup>1)</sup>。

脾症の場合、脾臓組織の直接的な播種が要因となるため、腹腔内に多く生じ、腸間膜、小腸漿膜、大網、肝下面や横隔膜下、ダグラス窩などに認められるが、実質臓器内として肝、腎、膵、皮下、腕、頭蓋内などに生じた報告例<sup>2)</sup>もある。

腹腔内脾症については、脾臓摘出術後患者の約 32<sup>3)</sup>～66%<sup>4)</sup>に脾症を認めるとの報告がある。腹腔内脾症は脾外傷や腹部手術後 5ヶ月～33 年で生じ、個数は 100 個以上が多いが 400 個以上の報告もあり、大きさは数ミリメートル～7 cm が報告<sup>5)</sup>されている。多くは無症状で偶発的に発見されるが、腸閉塞、腹腔内出血、消化管出血、腹痛などの臨床症状を呈する場合や、以前から存在していた Felty 症候群や先天性溶血性貧血、血小板減少性紫斑病が摘脾後に splenosis 発症により再発した報告<sup>6)</sup>がある。

胸腔内脾症は 2006 年までに 56 例の報告があり、男女比は 2.6 : 1 で男に多い<sup>7)</sup>が、これは原因のほとんどが外傷によるためと思われる。本症はすべて左胸部のみに認められる<sup>8)</sup>。腹腔内脾症を伴っており、横隔膜の貫通性の外傷により胸腔内の心膜、胸膜、縦隔に認められるが、肺内に生じたとの報告<sup>9)</sup>もある。

胸腔内脾症については腹腔内脾症例の 27%、横隔膜損傷を伴う脾損傷例の約 18% に本症が認められる<sup>10)</sup>、ほとんど自覚症状がないことから実際にはさらに頻度は高いと考えられる。外傷から発見までの期間は 3～45 年、平均 21 年で、胸部 CT 画像では左肺に限局し胸膜に底辺をもつ円形の陰影として認められ、直径は 1～9 cm (ほとんどは 3 cm 大) で、12 cm 大の報告もある。単発性 25%、多発性 75% である<sup>11)</sup>。多くは無症状で偶発的に発見されるが、ごくまれに胸痛、咳、血痰などが認められる<sup>8)</sup>。

脾摘後の患者では末梢血の大小不同や、Howell-Jolly 小体、Heinz 小体の存在が知られるが、splenosis により脾機能の回復とともに消失されるとされ、本症例においても認められていない。本症例では蛋白分画は正常で、IgM 111 mg/dl と正常に保たれていた。

脾摘後に自家移植された脾臓組織は数ヶ月で脾機能を有し、20～30 cc 程度の容積があれば破碎赤血球が有意に減少することが認められる<sup>12)</sup>が、splenosis による脾摘後の感染防御の役割については、IgM やオプソニン効果を増加させて肺炎球菌に対する感染を減少させるとの報告がある。一方、十分な防御作用には元の脾臓の 50% 以上の組織量が必要との報告<sup>13)</sup>があるなど議論のあるところである。

異所性脾臓組織の画像診断には、一般的に核医学検査

が用いられる。脾摘後に自家移植された脾臓組織は数ヶ月で脾機能を有し、20～30 cc 程度の容積があれば脾臓シンチグラフィーにて取り込まれる<sup>12)</sup>。

網内系のなかで高い貪食能を有するのは肝臓の Kupffer 細胞と脾臓の細網細胞であり、脾臓の同定にはこれを利用しており、シンチグラフィーとしては <sup>99m</sup>Tc-スズコロイド、イオウコロイド、<sup>99m</sup>Tc-熱処理障害赤血球、<sup>111</sup>I-標識血小板などによる脾臓シンチグラフィーがあり、後 2 者では脾臓組織に集積性が高く、より有用である。注射されたスズコロイドは脾臓に 10% 程度しか取り込まれないが、熱処理障害赤血球は 90% 以上が取り込まれ<sup>14)</sup>、<sup>99m</sup>Tc-熱処理障害赤血球シンチグラフィーでは 1～2 cm 大の、機能のある脾臓組織を検出できるとされる。近年、網内系細胞に取り込まれる性質のある超常磁性酸化鉄製剤 (superparamagnetic iron oxide : SPIO) を造影剤として使用した SPIO 造影 MRI が行われているが、シンチグラフィーよりも解像度が高く、核種を使用せず被曝の心配もない点も、脾症や副脾の画像診断に有用として近年注目されている。

脾臓は MRI の T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号を示すが、SPIO 造影後の T2 強調像 (T2\*) は信号低下を示すことから確定診断される。静脈に投与された SPIO は 8 割が肝臓へ、残りの 2 割が脾臓へ取り込まれるため、肝内脾症においても SPIO 造影後の T2 強調像 (T2\*) で、肝の信号低下に比べ脾臓の信号低下が小さいことから診断に有用とされる<sup>15)16)</sup>。しかしまれに肝内脾症例で、脾症に著明な鉄沈着が求められる場合、通常の T1、T2 強調像ですでに低信号を示す例があり、注意が必要である<sup>17)</sup>。

脾症はこれらの画像的検査により確定診断が得られ、特に腫瘍による臨床症状がみられない場合、治療の必要性がない病態である。

CT ガイド下生検や針生検は往々にして診断が得られず、胸腔鏡検査での術中迅速標本においても場合によってはリンパ増殖性疾患などと誤診を生じることが報告されており、注意を要する<sup>18)19)</sup>。

thoracic splenosis はほとんどが非浸襲的に診断可能であり、key point として多発性で、症状がなく、左胸に限局した、胸膜病変で、既往歴に胸腹部の傷害と脾摘のある場合は本症を常に鑑別診断に入れ<sup>20)</sup>、正しく画像診断を行うことにより不必要な生検や外科的侵襲を避けることが必要である<sup>20)21)</sup>。

本症例の概要は日本呼吸器学会第 45 回中国・四国地方会 (2010 年 7 月、徳島市) にて発表した。

謝辞：PET-CT 所見のご指導を賜りました済生会西条病院放射線科の大谷治彦先生、<sup>99m</sup>Tc-スズコロイドシンチグラフィー所見のご指導を賜りました労働者健康福祉機構愛媛労

災病院放射線科 重澤俊郎先生（現 松山赤十字病院）に感謝申し上げます。

著者の COI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

### 引用文献

- 1) Buchbinder JH, et al. Splenosis: multiple peritoneal splenic implants following abdominal injury. *Surgery* 1939; 6: 927-34.
- 2) Wojcik J, et al. Thoracic splenosis. *Pol Przegl Chir* 2009; 81: 576-86.
- 3) Stewart CA, et al. Scintigraphic demonstration of splenosis. *Clin Nucl Med* 1986; 11: 161-4.
- 4) Lüdtke FE, et al. Splenic function after splenectomy for trauma. Role of autotransplantation and splenosis. *Acta Chir Scand* 1989; 155: 533-9.
- 5) Fleming CR, et al. Splenosis: autotransplantation of splenic tissue. *Am J Med* 1976; 61: 414-9.
- 6) Sikov WM, et al. Splenosis presenting as occult gastrointestinal bleeding. *Am J Hematol* 2000; 65: 56-61.
- 7) Khan AM, et al. Thoracic splenosis: A diagnosis by history and imaging. *Respirology* 2008; 13: 481-3.
- 8) Malik UF, et al. Parenchymal thoracic splenosis: history and nuclear imaging without invasive procedures may provide diagnosis. *J Clin Med Res* 2010; 2: 180-4.
- 9) Gezer S, et al. Rare cause of pleural nodularity: Splenosis. *J Natl Med Assoc* 2006; 98: 1342-4.
- 10) Normand JP, et al. Thoracic splenosis after blunt trauma: frequency and imaging findings. *AJR Am J Roentgenol* 1993; 161: 739-41.
- 11) Yamine JN, et al. Radionuclide imaging in thoracic splenosis and a review of the literature. *Clin Nucl Med* 2003; 28: 121-3.
- 12) Corazza GR, et al. Return of splenic function after splenectomy; how much tissue is needed? *Br Med J* 1984; 289: 861-4.
- 13) Hansen K, et al. Asplenic-hyposplenic overwhelming sepsis: postsplenectomy sepsis revisited. *Pediatr Dev Pathol* 2001; 4: 105-21.
- 14) Gunes I, et al. Scintigraphic detection of splenosis: superiority of tomographic selective spleen scintigraphy. *Clin Radiol* 1994; 49: 115-7.
- 15) 五味達哉, 他. SPIO の脾における有用性. *画像診断* 2006; 26: 895-900.
- 16) Ishibashi M, et al. Intrathoracic splenosis: evaluation by superparamagnetic iron oxide-enhanced magnetic resonance imaging and radionuclide scintigraphy. *Jpn J Radiol* 2009; 27: 371-4.
- 17) Nakajima T, et al. Intrahepatic splenosis with severe iron deposition presenting with atypical magnetic resonance images. *Intern Med* 2008; 47: 743-6.
- 18) Malik UF, et al. Parenchymal thoracic splenosis: history and nuclear imaging without invasive procedures may provide diagnosis. *J Clin Med Res* 2010; 2: 180-4.
- 19) Kim K, et al. Thoracic splenosis: a case report and the importance of clinical history. *J Korean Med Sci* 2010; 25: 299-303.
- 20) Khan AM, et al. Thoracic splenosis: know it—avoid unnecessary investigations, interventions, and thoracotomy. *Gen Thorac Cardiovasc Surg* 2011; 59: 245-53.
- 21) Maqbul KA, et al. If you suspect it, you can avoid thoracotomies. *J Natl Med Assoc* 2007; 99: 94-5.

**Abstract****A case of thoracic splenosis**Kosuke Mori<sup>a,\*</sup><sup>a</sup>Department of Respiratory Medicine, Ehime Rosai Hospital

\*Present address: Department of Internal Medicine, Murakami Memorial Hospital

This case report describes a 37-year-old woman, who was diagnosed incidentally with thoracic splenosis (TS) in the evaluation of pneumonia, 20 years after a traffic accident and splenectomy. A <sup>99m</sup>Tc sulfur colloid scan demonstrates a multiple area of increased uptake at the left hemithorax and left abdominal area corresponding to the nodules on the CT scans. Splenosis is the heterotopic autotransplantation of splenic tissue after splenic trauma or surgery in the abdominal, pelvic or thoracic cavity. Most TS cases are asymptomatic and are diagnosed incidentally as pleural nodules or masses on a chest radiograph or unrelated diagnostic imaging. Multiple, asymptomatic, left-sided pleura-based lesions associated with a history of splenic trauma or surgery are the key features suggesting a diagnosis of TS. This diagnosis can often be confirmed by superparamagnetic iron oxide (SPIO) -enhanced MRI and radionuclide scintigraphy, noninvasively. Awareness of this diagnosis can avoid unnecessary invasive diagnostic procedures, including surgical intervention or thoracotomy. In conclusion, thoracic splenosis should be considered in a differential diagnosis when patients present with intrathoracic masses accompanied by a history of splenic injury. We should avoid unnecessary invasive diagnostic procedures by a proper imaging diagnosis.