

## ●症 例

## 左胸水を合併した縦隔血管脂肪腫の1例

赤沢 慶子 池亀 聡 吉見 通洋  
田尾 義昭 岡林 寛 高田 昇平

要旨：症例は61歳、女性。呼吸困難、咳嗽を契機に胸部X線写真で左胸水貯留を指摘された。胸腔ドレナージ後の造影CTで大動脈弓部頭側に強い増強効果を示す腫瘤を認めた。胸水はリンパ球・中皮細胞主体の滲出性であったが確定診断に至らなかった。胸腔鏡下手術で縦隔腫瘍を摘出し、病理学的に血管脂肪腫と診断された。摘出後腫瘍の再発、胸水の再貯留は認めていない。

キーワード：血管脂肪腫、縦隔腫瘍、胸水

Angiolipoma, Mediastinal tumor, Pleural effusion

## 緒 言

胸水の原因として種々の疾患（悪性疾患、感染性疾患、肺塞栓症、消化管疾患、心疾患、産婦人科領域疾患、膠原病類縁疾患、薬剤性胸水、漏出性の機序をきたす諸疾患など）が知られその機序が議論されている<sup>1)</sup>が、縦隔腫瘍に伴う胸水はまれで報告も少なく、その機序は十分に議論されていない。今回我々は、縦隔血管脂肪腫が原因で左胸水を呈した興味深い1例を経験したので、文献的考察を交え報告する。

## 症 例

患者：61歳、女性。

主訴：呼吸困難。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

喫煙歴：なし。

現病歴：2015年6月上旬より呼吸困難、咳嗽が出現し前医で投薬されるも症状は持続した。2015年8月に胸部単純X線写真にて左胸水貯留を認め当院紹介となった。

入院時現症：身長158cm、体重55.8kg、体温36.8℃、血圧158/80mmHg、脈拍62回/min、表在リンパ節触知せず、左呼吸音軽度減弱。

検査所見（表1）：白血球増多はなく、C反応性蛋白（CRP）は軽度上昇していた。CEA、CYFRA、Pro-GRP

などの腫瘍マーカーは正常範囲内で、T-SPOT®.TBは陰性であった。

画像検査：胸部X線写真で中等量の左胸水を認めた（図1）。胸腔ドレナージ後の胸部造影CTでは肺内に異常所見は認めず、大動脈弓部頭側の中縦隔に強い造影剤増強効果を示す分葉状腫瘤を認めた（図2）。MRIではT1強調画像で高信号、T2強調画像で著明な高信号を示した（図3）。

胸水検査（表2）：黄色透明で、リンパ球・中皮細胞主体の滲出性であった。胸水アデノシンデアミナーゼ（ADA）の上昇は認めず、細胞診はClass IIであった。一般細菌検査・抗酸菌検査とも陽性所見は認めなかった。

臨床経過：胸水を伴った縦隔腫瘍に対し、診断・治療目的に第13病日に胸腔鏡手術を行った。

手術所見：左胸腔より胸腔鏡を挿入し観察した。腫瘍は大動脈弓部頭側に大動脈弓に接する形で存在し、多数の栄養血管を伴っており、一部胸腔内へ進展していた。胸腔鏡下に摘出を試みたが、腫瘍は易出血性であったため前方腋窩切開も加え腫瘍を摘出した。

肉眼所見：腫瘍は被膜を有し、断面で赤褐色部と黄色部、黄白色部の混在を認め拡張した血管を認めた（図4A）。

病理所見：成熟した脂肪細胞と毛細血管が混在（図4B）しており、血管脂肪腫の診断であった。

縦隔腫瘍摘出術後、胸腔ドレインからの排水量は減少し、術後3日目にドレインを抜去した。そのほか大きな合併症はなく、術後8日目に退院した。以後外来フォローを続けているが、術後6ヶ月経過後も腫瘍の再発、胸水の再貯留を認めてない。

連絡先：赤沢 慶子

〒811-3195 福岡県古賀市千鳥1-1-1

独立行政法人国立病院機構福岡東医療センター

(E-mail: k.bamboo@outlook.jp)

(Received 22 Feb 2016/Accepted 5 Jul 2016)

表 1 入院時検査所見

Hematology		Serum chemistry	
White blood cell	4,800/ $\mu$ l	Total protein	7.4 g/dl
Neut	61.4%	Albumin	4.3 g/dl
Eos	1.7%	T-bil	0.62 mg/dl
Bas	0.2%	AST	19 U/L
Mon	4.4%	ALT	14 U/L
Lym	32.3%	$\gamma$ -GTP	23 U/L
Red blood cell	$454 \times 10^4$ / $\mu$ l	LDH	187 U/L
Hb	12.3 g/dl	Amylase	66 IU/L
Ht	37.9%	Glucose	102 mg/dl
Platelet	$15.8 \times 10^4$ / $\mu$ l	BUN	19.9 mg/dl
		Cr	0.85 mg/dl
		Na	142.0 mEq/L
		Cl	105.9 mEq/L
		K	4.3 mEq/L
		CRP	1.03 mg/dl
Tumor marker			
CEA	<0.5 ng/ml		
CYFRA	0.98 ng/ml		
Pro-GRP	44.23 pg/ml		



図 1 入院時胸部単純 X 線写真. 左胸水を認めた.

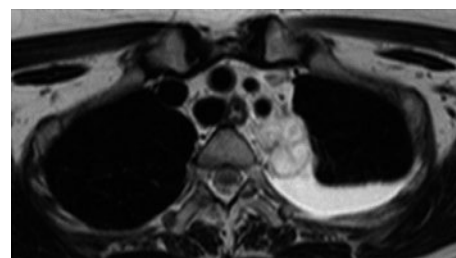


図 3 胸部 MRI, T2WI. 分葉状腫瘍は高信号を示した.



図 2 胸部造影 CT. 大動脈弓部頭側に不均一な造影剤増強効果を示す分葉状腫瘍を認めた.

表 2 胸水検査

pH	7.9
Specific gravity	1.035
Biochemistry	
Protein	5.2 g/dl
LDH	130 U/L
ADA	12.9 U/L
CEA	<0.5 ng/ml
Cell analysis	
Cell count	480/ $\mu$ l
Lym	47%
Neut	6%
Macrophage	34%
Eos	2%
Mesothelial cell	11%
Cytology	
	Class II

## 考 察

今回我々は、左胸水貯留を契機に発見され、摘出後に胸水が軽快した縦隔血管脂肪腫の 1 例を経験した.

血管脂肪腫は 1912 年 Bowen<sup>2)</sup>による四肢の皮下に発生

した症例が最初の報告とされる<sup>3)</sup>. 組織学的には種々の割合で脂肪組織と血管組織から構成され、血管組織は毛細血管からなり、一部の管腔内にフィブリン血栓を認めることがある<sup>3,4)</sup>. 全脂肪腫の 5~17%を占め、思春期に上肢や胸腹壁の皮下、筋肉に好発する良性軟部腫瘍である<sup>3,5)</sup>. 画像所見では CT で低吸収値を示し、造影剤で不

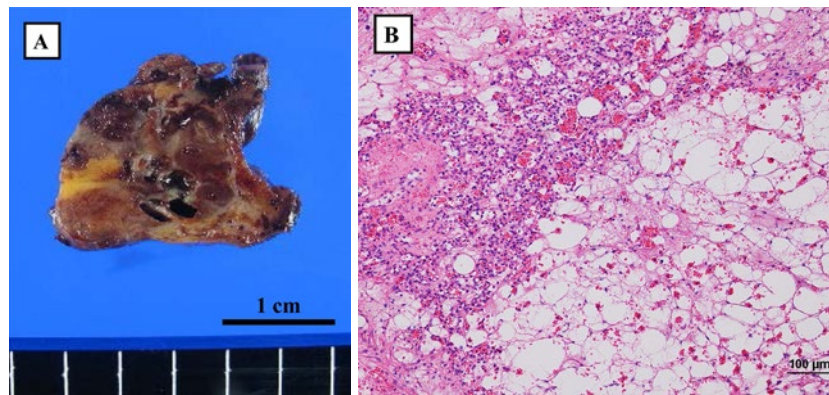


図4 (A) 手術標本の肉眼的所見。腫瘍は被膜を有し、断面で赤褐色部と黄色部、黄白色部の混在を認め拡張した血管を認めた。(B) 病理組織所見 (hematoxylin-eosin 染色, ×200)。腫瘍組織中では成熟した脂肪細胞と毛細血管が混在している。

均一に増強されることが多い<sup>6)~9)</sup>。血管脂肪腫が縦隔に発生することはきわめてまれで、我々が調べたかぎりでは報告は7例のみで、2005年以降の報告は2例であった<sup>10)11)</sup>。本症例では造影CTで一部に強い増強効果(図2)を示し、術前には血管腫等の血流豊富な腫瘍が鑑別として挙げられた。肉眼的に被膜を有し、組織学的に血管増生を伴った成熟脂肪細胞が分葉状に増殖していることから、病理学的に血管脂肪腫と診断された。毛細血管性ないし静脈性血管腫との鑑別は容易であり、また一部に拡張した静脈を混在していたが異常動・静脈の増生はなく、動静脈瘻などの血管腫様病変とも区別された。

また、興味深い点として本症例では左胸水貯留を認めた。縦隔血管脂肪腫で胸水貯留の報告はなく、類似したものでは胸水を伴った縦隔血管腫の報告<sup>12)</sup>が1例あるのみであった。この報告では囊胞性成分からの液体漏出の可能性が議論されており、摘出後に胸水は消失した。本症例では明らかな囊胞性成分を認めず、前述の機序は考えにくかった。術中の観察で腫瘍が一部胸腔内に進展していたこと、胸水中に反応性と思われる中皮細胞を多数認めたこと、摘出後に胸水が消失したこと、そのほかの胸水貯留をきたす疾患がないことなどから、腫瘍による炎症などの刺激が胸膜に反応を及ぼした可能性が考えられた。それとともに組織標本で拡張した血管を認めており、腫瘍内毛細血管内圧の上昇や毛細血管の透過性亢進による機序なども考えられた。

本症例は血管脂肪腫が縦隔に発症した点と左胸水が縦隔腫瘍に伴って発症したという点において、非常に興味深い症例と考えられた。疾患の特徴や病態の解明のために、今後の症例集積が望ましい。

謝辞：本症例に関して貴重なご意見を賜りました福岡東医療センター病理診断科 居石克夫先生に深謝いたします。

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) Light RW. Physiology of the pleural space. In: *Pleural Diseases*. 5th ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins. 2007; 7-14.
- 2) Bowen JT, et al. Multiple subcutaneous hemangiomas, together with multiple lipomas, occurring in enormous numbers in an otherwise healthy, muscular subject. *Am J Med Sci* 1912; 114: 189-92.
- 3) Howard WR, et al. Angiolipoma. *Arch Dermatol* 1960; 82: 924-31.
- 4) Dixon AY, et al. Angiolipomas: an ultrastructural and clinicopathological study. *Hum Pathol* 1981; 12: 739-47.
- 5) Lin JJ, et al. Two entities in angiolipoma. A study of 459 cases of lipoma with review of literature on infiltrating angiolipoma. *Cancer* 1974; 34: 720-7.
- 6) Matsushima K, et al. Spinal extradural angiolipoma: MR and CT diagnosis. *J Comput Assist Tomogr* 1987; 11: 1104-6.
- 7) Preul MC, et al. Spinal angiolipoma: Report of three cases. *J Neurosurg* 1993; 78: 280-6.
- 8) Provenzale JM, et al. Spinal angiolipomas: MR features. *AJNR Am J Neuroradiol* 1996; 17: 713-9.
- 9) Weill A, et al. Spinal angiolipomas: CT and MR aspects. *J Comput Assist Tomogr* 1991; 15: 83-5.
- 10) Gorospe L, et al. Preoperative Embolization of a Posterior Mediastinal Lipid-Poor Angiolipoma Mimicking a Paravertebral Nerve Sheath Tumor. *Ann Thorac Surg* 2015; 100: 705-7.
- 11) Rodrigues JC, et al. A rare cause of neural forami-

nal widening. J Radiol Case Rep 2012; 6: 1-8.

日臨外会誌 2003; 64: 1868-71.

12) 横地 隆, 他. 胸水を伴った縦隔発生血管腫の1例.

### Abstract

#### A case of middle mediastinal angioliipoma complicated by left pleural effusion

Keiko Akazawa, Satoshi Ikegame, Michihiro Yoshimi,  
Yoshiaki Tao, Kan Okabayashi and Shohei Takata  
National Hospital Organization Fukuoka-Higashi Medical Center

A sixty-one-year-old female complaining of dyspnea and cough was referred because of a left-pleural effusion on a chest radiograph. After the chest drainage, contrast-enhanced chest computed tomography revealed a lobulated nodule with strong enhancement above the aortic arch. Definite diagnosis was not derived by the exudative pleural effusion, which mainly consisted of lymphocyte and mesothelial cells. For the diagnosis and treatment, the tumor was resected by thoracoscope. The pathological examination resulted in a diagnosis of angioliipoma. After surgery, she was followed up for 6 months with no recurrence of tumor or pleural effusion. This case is noteworthy because of rareness of the mediastinal angioliipoma and also the complication of the pleural effusion.