

## 非外傷性脾破裂にて発見された悪性リンパ腫の1例

田中 麻美<sup>1)</sup>      湊 拓也<sup>1)</sup>      山村 陽子<sup>1)</sup>      片山 和久<sup>1)</sup>  
 石倉 久嗣<sup>1)</sup>      一森 敏弘<sup>1)</sup>      石川 正志<sup>1)</sup>      沖津 宏<sup>1)</sup>  
 木村 秀<sup>1)</sup>      阪田 章聖<sup>1)</sup>      山下 理子<sup>2)</sup>      藤井 義幸<sup>2)</sup>

1) 徳島赤十字病院 消化器科

2) 徳島赤十字病院 病理部

## 要 旨

非外傷性脾破裂は稀な疾患であり、腹腔内出血を来とし急性腹症として発症することが多く原因の診断は困難である。今回の症例では、非外傷性脾破裂にて脾原発性悪性リンパ腫が発見された。症例は70歳代、男性、慢性閉塞性肺疾患にて在宅酸素療法を行っていた。一過性意識消失発作が出現後、近医を受診された。貧血と血小板減少を認め、腹部CTにて脾破裂と診断され当院紹介となった。外傷は認めず来院時ショック状態であり、腹部CTにて脾臓の被膜破綻と出血が見られ、全身状態が不良なため手術を断念し選択的脾動脈塞栓術を施行した。塞栓術後は出血なくショック状態から回復したが、入院中肺炎を併発し永眠した。明らかな外傷機転がなく、LDH 3,290U/l、sIL-2R 2,084U/lと上昇しており、病理解剖にて悪性リンパ腫による非外傷性脾破裂と最終診断した1例を経験した。

キーワード：脾破裂、悪性リンパ腫、カテーテル塞栓術

## はじめに

非外傷性脾破裂、すなわち特発性脾破裂は稀な疾患であるが、急性腹症として発症し、腹腔内出血を生じるため、緊急止血術を要することが多い。脾破裂は種々の病的状態で発症するが、発症時にはその原因が不明瞭で、診断に難渋する。今回、われわれは非外傷性脾破裂にて発見された悪性リンパ腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

## 症 例

症 例：70歳代、男性

主 訴：ショック

既往歴：肺気腫（在宅酸素療法導入中）、糖尿病

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：一過性意識消失発作が出現し、近医を受診した。せん妄が激しく、鎮静剤を使用後、血圧低下を認めた。血液検査にて著明な貧血と血小板の低下を認めた。腹部造影CTにて脾破裂が疑われ、当院紹介受診となった。明らかな外傷機転はなく、腹痛や背部痛の

訴えはなかった。

来院時現症：体温 37.3℃、血圧 108/68mmHg (DOA 5γ)、脈拍 105回/分、体表 明らかな打撲痕なし、眼瞼結膜貧血あり、眼球結膜黄疸なし、表在リンパ節腫脹なし、呼吸音 清、心音 純、腹部平坦・軟、圧痛なし、反跳痛なし、肝脾触知せず、下腿浮腫なし

来院時検査所見：WBC 12,460/μl、RBC 288×10<sup>4</sup>/μl、Hb 8.9g/dl、Ht 26.1%、PLT 8.3×10<sup>3</sup>/μl、AST 145 U/l、ALT 39U/l、LDH 3,290U/l、CK 610mg/dl、T-Bil 0.8mg/dl、BUN 13mg/dl、Cr 0.61mg/dl、Na 127mg/dl、K 4.7mg/dl、Cl 86mg/dl、BS 120mg/dl、CRP 13.16mg/dl、sIL2R 2,084U/l、KL 6 509U/l、PT秒 16.9秒、PT% 54%、PT-INR 1.48、APTT 36.7秒、Fib 243mg/dl、尿比重 1.050、pH 7.5、尿蛋白(-)、尿糖(-)、尿潜血(-)、尿ケトン体(-)、尿ウロビリノゲン(±)

来院時画像所見：胸部単純写真：肺過膨張所見あり、肺野透過性亢進を認める。

造影CT：脾臓は被膜が破綻しており、周囲に血腫が形成され、その内部に点状の出血点が確認できる。腎門部を首座に大動脈周囲に腫瘤状の低吸収域を認めた(図1)。

入院後経過：脾破裂を疑い，血管造影検査を施行し，上極動脈，上下終動脈より出血を認めた（図2）．選択的脾動脈塞栓術を施行し，血管造影とCTにて止血を確認した（図3，4）．貧血に対して濃厚赤血球輸血を行った．第1病日貧血の進行はなく，ショック状態は改善した．第2病日以降は全身状態は安定していたが，不穏が増悪し，さらに鎮静を行った．第7病日38度台の発熱が出現し，呼吸状態が悪化し，肺気腫に加え，肺炎，間質性肺炎増悪を認め（図5），ABPC/SBT投与，ステロイドパルス療法を行うも，呼吸状態の改善が見られず，第11病日永眠され，剖検を行った．



図3 腹部血管造影検査（コイル塞栓術後）  
上極動脈起始部にコイル留置



図1 腹部造影CT  
脾臓は腫大しており，中心部に低吸収域を認める．



図4 腹部造影CT（塞栓術後）  
脾臓の大部分は造影されておらず，壊死している．

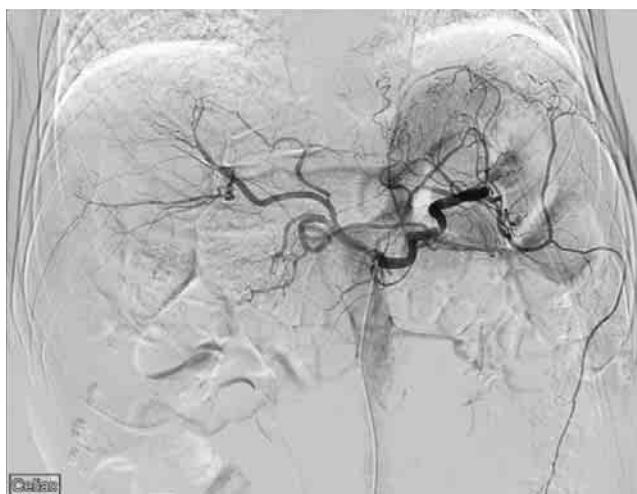


図2 腹部血管造影検査（腹腔動脈より造影）  
上極・上下終動脈より出血を認める．



図5 胸部単純写真（臥位）  
両側肺野にび慢性にすりガラス陰影を認める．

## 剖検結果：

### 1) 悪性リンパ腫，非ホジキン，びまん性 B 大細胞型 (図 6)

脾臓は505gと腫大しており，中央部に4.2×5.5 cmの血腫が見られ，組織学的にほとんどが塞栓術により壊死に陥っているが，viable な部位では小型～中型，類円形で核に切れ込みのある細胞や多核細胞がびまん性に増殖していた．周囲の脈管内には大型細胞が充満しており，intravascular lymphoma 類似の病態があったと考える．大型細胞，ならびに小型～中型細胞は免疫組織学的には CD 20+，CD 3-，UCHL-1-，CD56-，CD 5-，CD10-，CD30-で，びまん性 B 大細胞型の非ホジキンリンパ腫として矛盾しない．その他，脾臓，肝臓，大動脈周囲リンパ節に病変が見られた．

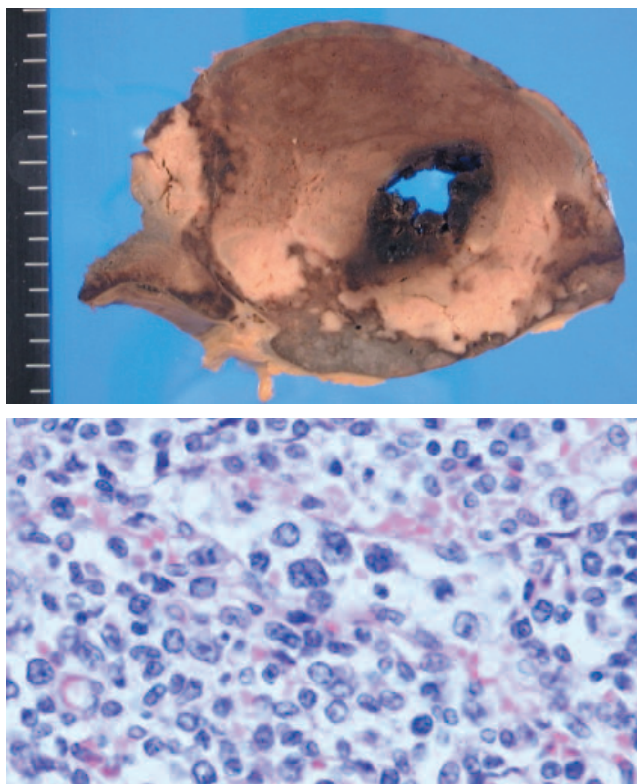


図 6 剖検所見

#### 上：脾臓肉眼像

中心部には血腫が見られ，ほとんどの部位が白色の壊死に陥っている．

#### 下：組織像 (H.E.染色×400)

壊死をまぬがれた部位では核にくびれを持った異型細胞が脾臓実質及び脈管内に増殖している．脈管内の細胞は大型である．

### 2) 肺病変：蜂窩肺，気管支肺炎，器質化肺炎，Bulla，両側胸水

蜂窩肺の状態で，組織の改変が著しいため原疾患の特定が難しい．両側下葉には alveolar broncholization を呈す肺胞内に，好中球が多数見られ，気管支肺炎の合併と考えられる．右上葉では器質化肺炎と肺胞内へのフィブリン様物質析出が見られ，以前の炎症の存在が示唆された．

以上により，死因は悪性リンパ腫（脾破裂）が引き金になり，肺炎による呼吸不全増悪であった．

## 考 察

非外傷性脾破裂は稀な疾患であり，基礎疾患が潜在していることが多い．以前は伝染性単核球症，マラリア，風疹，サイトメガロウイルス感染症などの感染症の報告が多かった<sup>1)</sup>が，悪性腫瘍，およびその転移などによる報告も増えてきた．腫瘍細胞の浸潤により病的状態にある脾臓の非外傷性破裂は pathologic rupture と呼ばれ<sup>2)</sup>，血液疾患によるものが多いが，悪性リンパ腫を基礎疾患として脾破裂が併発した報告は1946年の Littlefield<sup>3)</sup>の報告が最初である．検索範囲においては，本邦では自験例を含めて15例の報告があり，このうち術前に悪性リンパ腫と診断がついていたものは4例であった．また手術を施行した症例は11例中8例で，心肺停止で発見された症例もあった．組織型としては15例中11例が非ホジキンリンパ腫であった<sup>4)</sup>．本例は非ホジキンリンパ腫であり，剖検により診断がついた．脾破裂は緊急性を要する疾患ではあるが，治療前に悪性リンパ腫が基礎疾患にあると診断することは困難である．悪性リンパ腫の脾臓への浸潤は21～57%に見られるが，脾原発の悪性リンパ腫は悪性リンパ腫全体の0.6～1%と稀であり，さらに自然破裂は極めて稀である<sup>5), 12), 13)</sup>．脾原発悪性リンパ腫の診断基準としては Gupta のものが最も用いられている．これは①脾腫，②諸検査にて他の疾患を除外すること，③試験開腹し肝生検および腸間膜と傍大動脈のリンパ節生検でリンパ腫のないこと，④脾原発のリンパ腫が発見されて6ヶ月経過しても他臓器に同種の疾患が認められないことが条件とされている<sup>6)</sup>．Gupta らの条件をすべて満たす症例は少なく，非ホジキンリンパ腫が元来多中心性の伸展様式をとることを考えれば，原発の意義は薄れるとの報告もある<sup>7)</sup>．本症例で

は、脾臓、肝臓、傍大動脈リンパ節で病変を認め、臨床経過を考慮すると脾原発と思われるが、Guptaの診断基準は満たしていない。Guptaの条件を満たす脾原発悪性リンパ腫自体が稀だと思われ、悪性リンパ腫に原発巣を特定する意味はないように思われる。脾破裂の機序として、岩渕らは3つの仮説を紹介している。Hynesの説では、腫瘍細胞の脾被膜への直接浸潤、脾梗塞とそれに続発する被膜下出血および被膜の破綻、血液凝固異常によるとされている<sup>8)</sup>。またSonobeらの説では、腫瘍細胞の著しい増殖による脾実質内圧の急激な上昇によるとされている<sup>14)</sup>。Thomsonの説では、腫瘍により過伸展されている被膜に対する横隔膜や腸管運動による機械的刺激により破裂するとされている<sup>15)</sup>。本症例では、脾動脈塞栓術後のため、詳細は不明だが、脾腫とともに、リンパ腫細胞のびまん性の増殖が見られており、腫瘍細胞による脾梗塞の機序が最も疑わしいが、脈管内には大型細胞が充満しており、intravascular lymphoma類似の病態があったことや、PT延長や血小板減少などの血液凝固異常も破裂に関与した可能性がある。

Ahmannの脾原発性悪性リンパ腫の病期分類はStage I：脾に限局するもの、Stage II：脾門部のリンパ節転移を伴うもの、Stage III：肝転移、腸間膜あるいは傍大動脈リンパ節転移を認めるもの、としている<sup>1)</sup>。本症例は肝転移、傍大動脈リンパ節転移を認め、Stage IIIであると考えられた。

脾破裂に対して、外傷性のものに対しては、循環動態の安定しているものに対しては血管造影で選択的脾動脈塞栓術を行い、止血するという報告が見られる。また開腹術となったとしてもすべての症例に脾摘術を行うのではなく、脾縫合術や部分切除術を積極的に行うという報告もある<sup>9),10)</sup>。悪性リンパ腫の治療は化学療法が中心となっているが、脾原発のものは手術的治療の有効性も認められている。脾原発悪性リンパ腫の3年生存率は36～80%であり、全身性リンパ腫と同等である。Stage Iでは脾臓摘出のみで3年生存率は76%であり、生存率はよいがStage IIIは脾摘に加えて化学療法を施行した方が成績がよいとの報告がある<sup>11)</sup>。

本症例では、入院時よりショック状態であり、循環動態が不安定であった。もともと肺気腫の既往があり、呼吸状態が悪く、救命のため、まずは選択的脾動脈塞栓術を施行せざるをえなかった。脾原発悪性リンパ腫Stage IIIであり、慢性呼吸不全にて在宅酸素療法

を導入中に非外傷性脾破裂を合併した稀な1例である。全身状態が安定すれば化学療法も考慮されたかもしれない。非外傷性脾破裂の場合、悪性リンパ腫など悪性腫瘍も鑑別にあげることがあると思われ、救命のために迅速な処置を要すると考えられた。

## 文 献

- 1) 堀川義文, 岩尾憲夫, 安田晶信: 特発性脾臓破裂「急性腹症のCT」, p446, へるす出版, 1998
- 2) Strickland AH, Marsden KA, Mcardle J et al: Pathologic Splenic Rupture as the Presentation of Mantle Cell Lymphoma, *Leuk Lymphoma* 41:197-201, 2001
- 3) Littelfield JB: Spontaneous rupture of the spleen. *Surg Obstet Gynecol* 82:207-211, 1946
- 4) 渡邊克隆, 神谷順一, 塩見正哉, 他: 脾破裂をきたした脾原発悪性リンパ腫の一例. *日臨外会誌* 68(8):2087-2091, 2007
- 5) 野沢宏彰, 大山繁和, 中島聰聰, 他: 胃切除後CTで発見された脾原発悪性リンパ腫の1例. *消化器外科* 19:2025-2029, 1996
- 6) Gupta TD, Coombes B, Brasfield RD: Primary malignant neoplasm of the spleen. *Surg Gynecol Obstet* 120:947-960, 1965
- 7) 松井 寛, 安藤重満, 榊原堅式, 他: 悪性リンパ腫を基礎疾患とした脾破裂の1例. *日消外会誌* 27:2166-2170, 1994
- 8) Hynes HE: Spontaneous rupture of the spleen in acute leukemia. Report of 2 cases. *Cancer* 17:1356-1360, 1964
- 9) 堀池重治, 前川和彦, 浅利 靖, 他: 脾損傷の保存的治療におけるTranscatheter Arterial Embolizationの役割. *日外傷研会誌* 3:276-281, 1989
- 10) 真々田裕宏, 隅崎達夫, 田島廣之, 他: 肝脾外傷に対する経カテーテル的動脈塞栓術の応用. *腹部救急診療の進歩* 11:339-342, 1991
- 11) Sumimura J, Miyata M, Nakao K et al: Primary lymphoma of the spleen. *Surg today* 22:371-375, 1992
- 12) Morel P, Dupriez B, Gosselin B et al: Role of early splenectomy in malignant lymphomas

- with prominent splenic involvement (primary lymphomas of the spleen) : A study of 59 cases, *Cancer* 71 : 207–215, 1993
- 13) Falk S, Stutte HJ: Primary malignant lymphomas of the spleen: a morphologic and immunohistochemical analysis of 17 Cases. *Cancer* 66 : 2612–2619, 1990
- 14) Sonobe H, Uchida H, Doi K et al: Spontaneous rupture of the spleen in acute myeloid leukemia. *Acta Pathol Jpn* 31 : 309–315, 1981
- 15) Thomson WHF: Diffuse lymphocytic lymphoma with splenic rupture. *Postgrad Med J* 45 : 50–51, 1966

---

## A Case of Non-Hodgkin Lymphoma Presenting with Spontaneous Splenic Rupture

Mami TANAKA<sup>1)</sup>, Takuya MINATO<sup>1)</sup>, Yoko YAMAMURA<sup>1)</sup>, Kazuhisa KATAYAMA<sup>1)</sup>, Hisashi ISHIKURA<sup>1)</sup>, Toshihiro ICHIMORI<sup>1)</sup>, Masashi ISHIKAWA<sup>1)</sup>, Hiroshi OKITSU<sup>1)</sup>, Suguru KIMURA<sup>1)</sup>, Akihiro SAKATA<sup>1)</sup>, Michiko YAMASHITA<sup>2)</sup>, Yoshiyuki FUJII<sup>2)</sup>

1) Division of Gastroenterology, Tokushima Red Cross Hospital

2) Division of Pathology, Tokushima Red Cross Hospital

Non-traumatic rupture of the spleen is a rare case. Spontaneous splenic rupture (SSR) without antecedent injury is a very rare complication. Its diagnosis is often difficult, since it tends to cause intraperitoneal bleeding and to assume the form of acute abdomen initially. Diagnosis of SSR is very difficult. We recently encountered a case of non-traumatic rupture of spleen accompanied by malignant lymphoma originated from the spleen. A 70-year-old man who have been undergone home oxygen therapy with COPD (chronic obstructive pulmonary disease) admitted to hospital as an emergency with pain and episode of temporary loss of consciousness. At that time, anemia and thrombopenia were noted and an immediate CT scan revealed massive intraperitoneal hemorrhage due to splenic rupture. Selective splenic artery embolization was therefore carried out. Continued intra-abdominal hemorrhage was successfully controlled by superselective embolotherapy using microcoils and gelatin sponge pledgets. There after, the patient recovered from the shock but has died of pneumonia 10 days later. Because the patient had no evidence of traumatic history and showed elevation of LDH (3290 U/l) and sIL-2R (2084 IU/L), it seems likely that this case had malignant lymphoma as an underlying disease. It is necessary to consider SSR not only in patients with known diagnosis of malignant disease but in the patients with negative anamnesis.

Key words: rupture of spleen, malignant lymphoma, catheter embolization

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 13:91–95, 2008

---