

—症例報告—

PET パラメトリックイメージングが診断の一助となった副腎の
chronic expanding hematoma の 1 例

林 暢彦¹ 桐山 智成¹ 小林 理佳¹ 中込 哲平¹
楊 菜洋¹ 汲田伸一郎¹ 木村 剛² 近藤 幸尋²

¹日本医科大学付属病院放射線科

²日本医科大学付属病院泌尿器科

A Case of Chronic Expanding Hematoma of the Adrenal Gland with Positron Emission Tomography
Parametric Imaging

Nobuhiko Hayashi¹, Tomonari Kiriyama¹, Rika Kobayashi¹, Teppei Nakagomi¹,
Nahiro Yan¹, Shin-ichiro Kumita¹, Go Kimura² and Yukihiro Kondo²

¹Department of Radiology, Nippon Medical School Hospital

²Department of Urology, Nippon Medical School Hospital

Abstract

Chronic expanding hematomas (CEH) are hematomas that continue to expand at least one month after onset. CEH often occur in the thoracic cavity or in the extremities secondary to trauma, surgery, anticoagulation therapy, or bleeding disorders. Few studies have reported CEH in retroperitoneal organs such as the adrenal glands and lesions without an apparent etiology. An 80-year-old woman was referred to our hospital for evaluation of a retroperitoneal tumor that was incidentally detected on ultrasonography. Computed tomography and magnetic resonance imaging showed a large left retroperitoneal mass (14 cm in diameter) with gradual peripheral enhancement and a suspected hemorrhagic component within the lesion. Parametric imaging using positron emission tomography (PET) showed mild accumulation of the tracer at the margins of the mass on the conventional standard uptake value images, relatively low accumulation on the slope images, and slightly higher accumulation on intercept images. Postoperative histopathological examination of the resected specimen revealed a mass that was encapsulated with fibrous tissue and primarily consisted of organized clots without evidence of tumor cells; the mass was diagnosed as an idiopathic CEH of the adrenal glands. The margins of the mass showed few inflammatory cell infiltrates consistent with the findings of parametric imaging, which appeared to accurately reflect the dynamics of fluorodeoxyglucose (FDG) in the body. PET parametric imaging can separately assess the metabolism and distribution of FDG in vivo and may be useful to determine the etiology and diagnosis of CEH.

(日本医科大学医学会雑誌 2023; 19: 263–268)

Key words: chronic expanding hematoma, parametric imaging, adrenal hemorrhage, adrenal tumor, positron emission tomography

Correspondence to Teppei Nakagomi, Department of Radiology, Nippon Medical School Hospital, 1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo 113-8603, Japan

E-mail: n-teppe@nms.ac.jp

Journal Website (<https://www.nms.ac.jp/sh/jmanms/>)

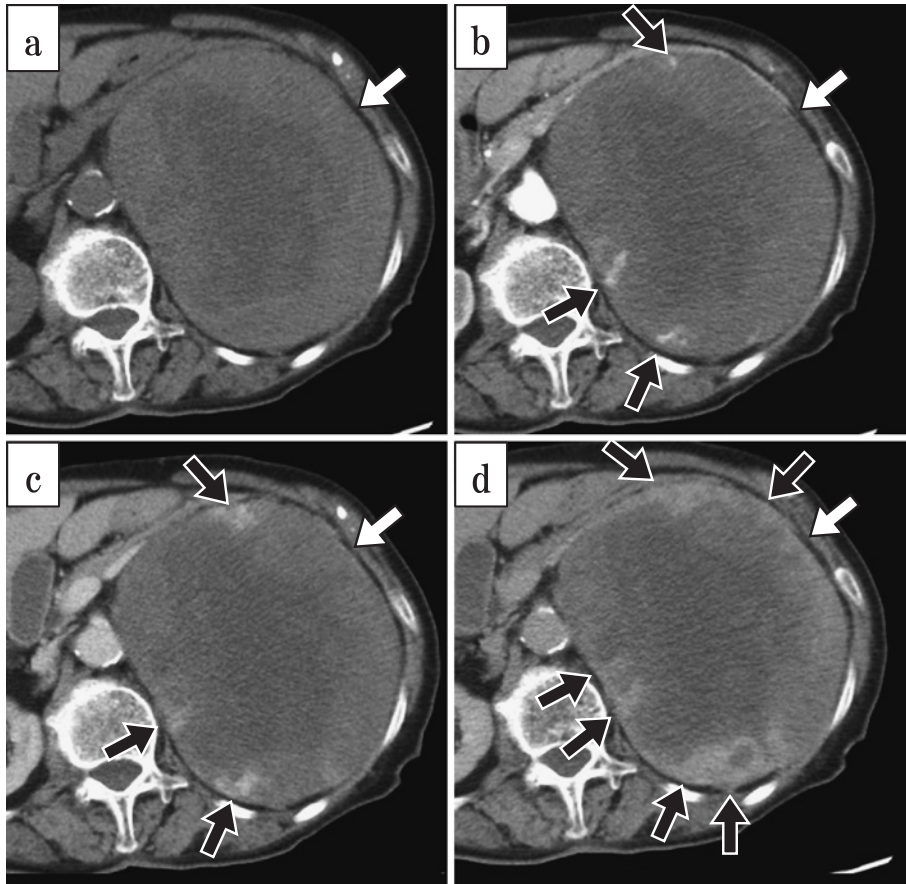


図1 造影CT：(a) 単純, (b) 早期相, (c) 門脈相, (d) 平衡相
左後腹膜腔内に辺縁平滑で境界明瞭な14 cm大の腫瘤を認めた(白矢印)。腫瘤中心部に造影効果はなかったが、辺縁には早期相より造影効果を認め、門脈相・平衡相にかけて遷延し増大した(黒矢印)。リンパ節転移や遠隔転移を認めなかった。

緒言

Chronic expanding hematoma (CEH) は1カ月以上の経過で緩徐に増大する血腫と定義され、全身のどの部位にも発生する。外傷などの契機が不明の場合、腫瘍との鑑別が問題になる。今回副腎腫瘍が疑われ、術後病理で特発性CEHと診断された症例において、PETパラメトリックイメージングを用いて評価した症例を経験した。パラメトリックイメージングがCEHの発症機序の解明や鑑別の一助となる可能性が示唆され、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

患者：80歳代女性

主訴：貧血、左背部痛

既往歴：高血圧、脂質異常症、左肺部分切除術後(原

疾患不明)

現病歴：近医で貧血(Hb 8.8 g/dL)の精査として施行された上部消化管内視鏡で胃後壁の壁外圧迫を疑う所見を認めた。腹部超音波検査では、左腎近傍に巨大腫瘍を認めたが、由来臓器は不明であった。当院消化器内科を受診し、造影CTで左副腎腫瘍が疑われ、泌尿器科に転科となった。

検査所見：血液生化学検査ではHb 8.4 g/dLと貧血を認めた。腫瘍マーカー(CEA, CA19-9)は正常範囲内だった。また、ノルアドレナリンは606 pg/mLと軽度高値だったが、そのほかの内分泌学的検査(コルチゾール, ACTH, レニン活性, アルドステロン, アドレナリン, ドーパミン)はすべて正常範囲内だった。

画像所見：腹部CTでは、左後腹膜に辺縁平滑、境界明瞭な14 cm大の腫瘍を認め、左副腎は分離できなかった。造影CTでは腫瘍の辺縁部に早期相から平衡相に緩徐に広がる造影効果を認めた(図1)。MRI

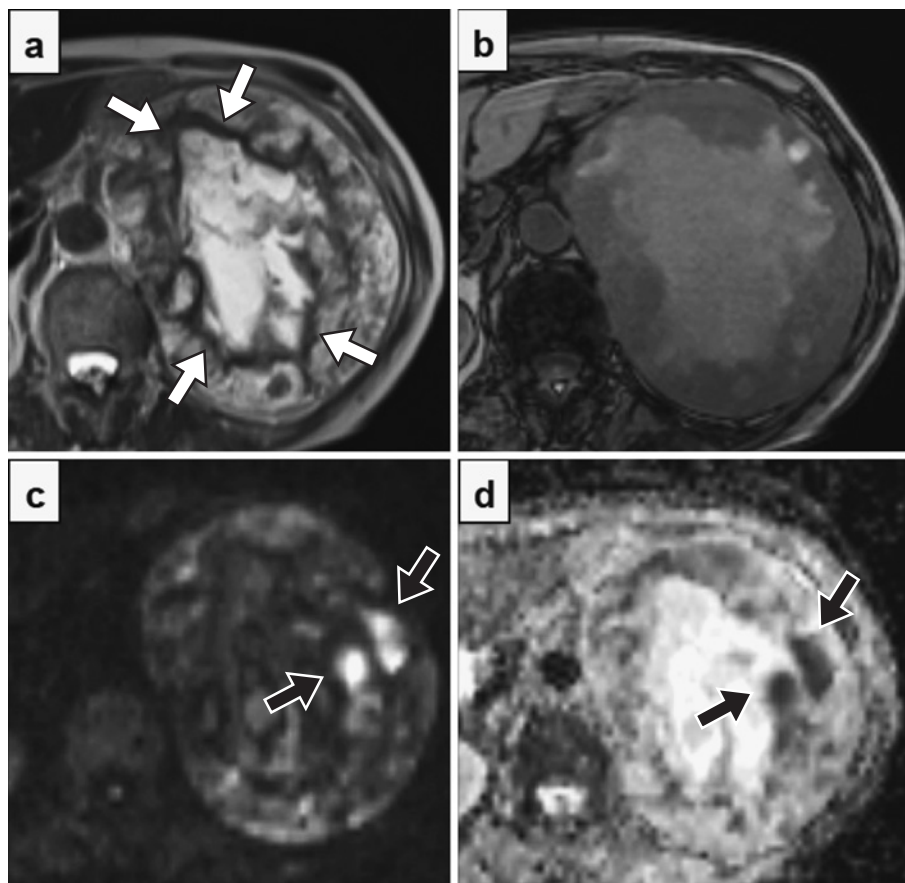


図2 単純MRI：(a) T2強調像, (b) T1強調像 (opposed), (c) DWI, (d) ADC map
 腫瘍は大きく2層の構造に分かれ, T2強調像では辺縁部は不均一な高信号を示し, 中心部は強い高信号を示した. この構造の境目には帯状の強い低信号を認めた (白矢印). T1強調像 (opposed) では信号低下はなく, 腫瘍内に脂肪成分が含まれないことが示された. DWIではモザイク状の高・低信号域が混在していた. DWIでの高信号域に一致してADC低下を認めた (黒矢印).

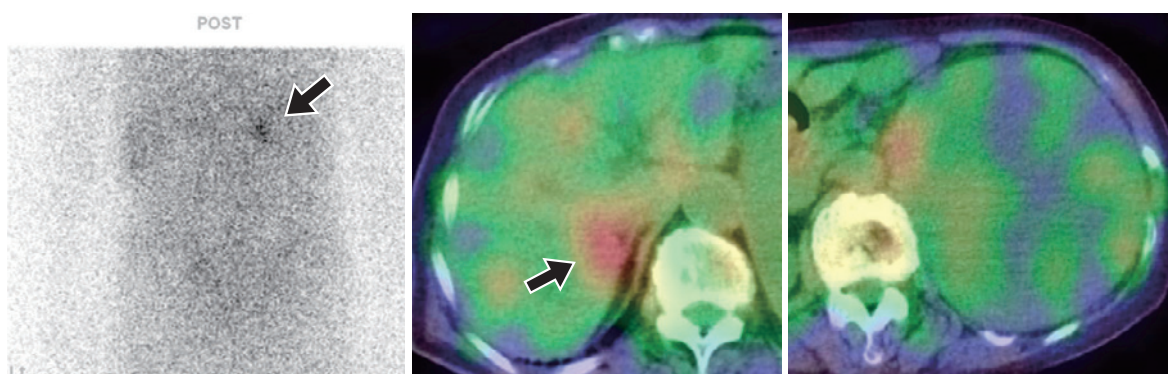


図3 ¹³¹I-アドステロールシンチ
 腫瘍に集積はなく, 対側の副腎集積も保たれていた (黒矢印).

では T2 強調画像で腫瘍の大部分は高信号を示し, 中心部と辺縁部の境界に帯状の強い低信号を認めた (図 2). ¹³¹I-アドステロールシンチでは, 腫瘍の内側辺縁に結節状の淡い集積を認めるのみで, 対側副腎の集積

は保たれていた (図 3).

FDG (fluorodeoxyglucose)-PET は, Siemens 社製 BIOGRAPH Vision 450 を用い, 体軸方向の撮像範囲 1,150 mm を 1 パス 4 mm/sec (4 分 48 秒) とし, 計

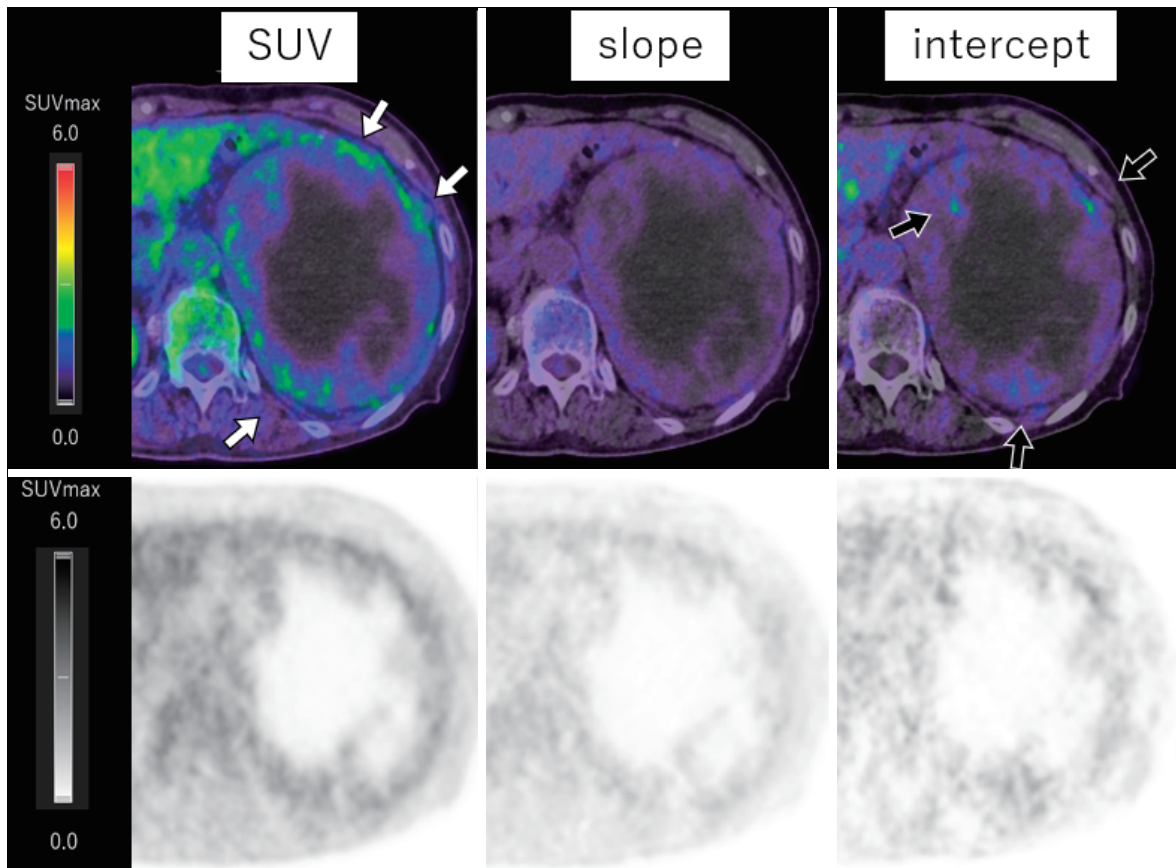


図4 parametric PET

腫瘍辺縁に SUV max 2.9 と軽度の集積を認めた (白矢印). slope 像ではほとんど集積はなく, intercept 像で辺縁に軽度の集積を認めた (黒矢印).

5パスを撮像した. パラメトリック解析を行い, 通常の SUV (standard uptake value) 画像のほかに, FDG の細胞内代謝速度を示す slope 画像, FDG の初期分布を反映する intercept 画像を得た. 軽度の集積 (SUV max 2.9) を認めた腫瘍の辺縁部は, slope 画像よりも intercept 画像で集積が高く (図4), 高いグルコース代謝を示す悪性細胞や炎症細胞浸潤に乏しいことが示唆された.

悪性腫瘍が否定できないため, 診断目的に待機的手術の方針となったが, 経過観察中に転倒したため救急搬送された. 貧血の進行 (Hb 5.7 g/dL) や, 腫瘍内部の出血成分の増大があり, 緊急で後腹膜腫瘍切除および左腎摘出術が施行された.

摘出標本所見: 腫瘍の大きさは 13×13×8 cm, 腎臓を含めた総重量は 1,049 g であった. 腫瘍は平滑な被膜を有し, 内部には中心部が器質化した血腫を認めた (図5).

病理所見: 腫瘍の大部分は線維性被膜を有す血腫であり, 被膜内には毛細血管が発達していた. 被膜の内側には菲薄化した副腎を認めた. 腫瘍内には腫瘍細胞

やマクロファージなどの炎症細胞浸潤は認めなかった (図6).

術後経過: 発症の物理的要因や出血素因はなく, 経過および病理所見から, 特発性 CEH と診断した. 術後, 左後腹膜膿瘍を発症し, 抗生剤投与および CT ガイド下持続的ドレナージ術を行ったが治療は難航した. 最終的に開腹による膿瘍摘除および洗浄・ドレナージを施行し, 第 128 病日に退院となったが, 以後 CEH および膿瘍の再発を認めていない.

考 察

CEH は Reid らにより提唱された疾患概念で, 1 カ月以上の経過で緩徐に増大する血腫とされている¹. 大部分は手術や外傷, 出血性素因を背景に生じ, 心血管の拍動や呼吸運動, 外傷の影響を受けやすい胸腔内や四肢軟部の報告が多い². PubMed で, “chronic expanding hematoma (s)” をキーワードに検索すると, 1970~2022 年に報告された 196 例のうち, 副腎を含む後腹膜発生は 11 例 (5.6%) と少なかった.

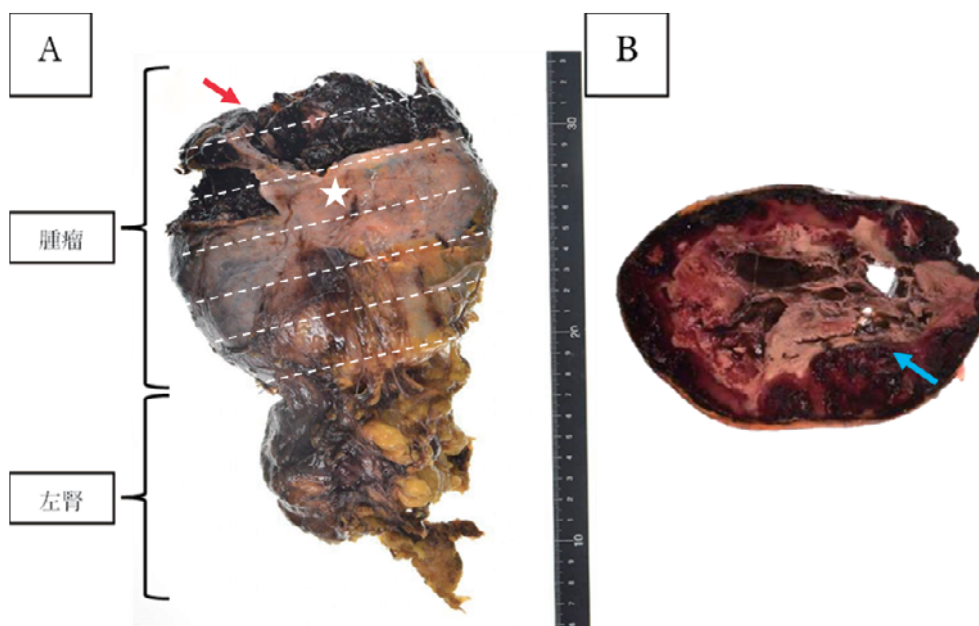


図5 摘出標本 A) 一塊となって摘出された腫瘍および左腎臓 B) ★での剖面
腫瘍表面に平滑な被膜があり，上極で破綻していた（赤矢印）（A）．腫瘍の大きさは13×13×8 cm，腎臓を含めた総重量は1,049 gであった．腫瘍内には血腫を認め，中心部では器質化していた（青矢印）（B）．



図6 組織学的所見（HE染色，40倍）
血腫は線維性被膜を有しており，被膜内には毛細血管が発達していた．被膜の内側には菲薄化した副腎（★）を認めた．腫瘍内には腫瘍細胞やマクロファージなどの炎症細胞浸潤は認めなかった．

本症例は明らかな外傷機転や出血性素因のない特発性の出血であり，腫瘍との鑑別に苦慮した．副腎に特発性出血が生じる機序として，副腎の解剖学的な因子の関与が指摘されている．副腎は3本の動脈により供血され，内部に多数の毛細血管が発達し，1本の静脈によって排血される vascular dam と呼ばれる構造を有する³．このため，仮説として静脈うっ滞やストレスによる副腎血流増加が特発性副腎出血の原因と推測

されている⁴．

CEH 形成のメカニズムとして，赤血球や白血球，ヘモグロビン，血小板，フィブリンの分解産物が周辺組織を刺激し，被膜の形成や毛細血管の発達を誘発するとともに，血管の透過性亢進や毛細血管からの出血を助長する．これにより血腫が増大すると考えられている⁵．

本症例では，造影CTの腫瘍辺縁の造影効果は被膜内に発達した毛細血管を反映していると考えられた．また，MRIのT2強調像で認めた帯状の強い低信号は，辺縁の比較的新しい血腫と中心部の古い血腫の境界に存在するヘモジデリンを反映していると思われる．PETでは外傷や手術など物理的要因が明らかな胸腔・骨盤内のCEHにおいて，辺縁部にSUV max 3.1～5.5の集積を認めたと報告があるほか⁶，下腿の外傷性CEHでは腫瘍辺縁のマクロファージの浸潤部に一致してSUV max 15.5と非常に高い集積の報告もあるが⁷，本症例はSUV max 2.9と既報の下限程度であった．

FDGはグルコースと同様に細胞膜のグルコーストランスポーターによって細胞内に取り込まれ，ヘキソキナーゼによりリン酸化される．FDG-6-リン酸は解糖系で代謝されず，細胞内に蓄積される．パラメトリックイメージングでは代謝されていないFDGの仮想的な初期分布である intercept 画像と，代謝（リン酸化）

速度を反映した slope 画像が得られる。本症例では病理像で辺縁部を含め血腫内に炎症細胞浸潤が乏しく、代謝された FDG より、被膜に発達した毛細血管から血腫内に拡散した代謝されていない FDG のほうが集積に寄与していたと推察される。上記のように外傷など物理的機序が明瞭で、炎症細胞浸潤に起因する集積の高い CEH が存在する一方で、本症例のように血腫内に炎症細胞浸潤が乏しい CEH の報告もあり、炎症細胞浸潤を伴わないような軽度の炎症の存在が形成過程として関与している可能性がある。本症例は CEH に対しパラメトリックイメージングを用いた初めての報告である。今後、パラメトリックイメージングが普及すれば、CEH における炎症細胞浸潤の程度を生体内で評価でき、CEH 形成のメカニズムの解明や鑑別診断に貢献できると思われる、さらなる症例の蓄積が望まれる。

結 語

今回われわれは、副腎の特発性 CEH に対し PET パラメトリックイメージングを用いて評価した症例を経験した。パラメトリックイメージングは CEH の成因解明や鑑別診断の一助となる可能性があり、今後さらなる症例の蓄積や検討が望まれる。

Conflict of Interest : 開示すべき利益相反はなし。

文 献

1. Reid JD, Kommareddi S, Lankerani M, Park MC:

Chronic expanding hematomas. A clinicopathologic entity. JAMA 1980; 244: 2441-2442.

2. 横井亮磨, 深田真宏, 藤林勢世, 遠藤真英, 村瀬勝俊, 吉田和弘: 副腎に発生した後腹膜 chronic expanding hematoma の 1 例. 日臨外会誌 2022; 83: 1164-1170.
3. Fowler AM, Burda JF, Kim SK: Adrenal artery embolization: anatomy, indications, and technical considerations. AJR Am J Roentgenol 2013; 201: 190-201.
4. Streeten DH, Phil D: Adrenal hemorrhage. Endocrinologist 1996; 6: 277-284.
5. Labadie EL, Glover D: Physiopathogenesis of subdural hematomas. Part 1: Histological and biochemical comparisons of subcutaneous hematoma in rats with subdural hematoma in man. J Neurosurg 1976; 45: 382-392.
6. Nishida Y, Kobayashi E, Kubota D, et al: Chronic expanding hematoma with a significantly high fluorodeoxyglucose uptake on ¹⁸F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography, mimicking a malignant soft tissue tumor: a case report. J Med Case Rep 2014; 8: 349.
7. Tokue H, Tokue A, Okauchi K, Tsushima Y: 2-[¹⁸F] fluoro-2-deoxy-D-glucose (FDG) positron-emission tomography (PET) findings of chronic expanding intrapericardial hematoma: a potential interpretive pitfall that mimics a malignant tumor. J Cardiothorac Surg 2013; 8: 13.

(受付 : 2023 年 3 月 17 日)

(受理 : 2023 年 5 月 19 日)

日本医科大学医学会雑誌は、本論文に対して、クリエイティブ・コモンズ表示 4.0 国際 (CC BY NC ND) ライセンス (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>) を採用した。ライセンス採用後も、すべての論文の著作権については、日本医科大学医学会が保持するものとする。ライセンスが付与された論文については、非営利目的の場合、元の論文のクレジットを表示することを条件に、すべての者が、ダウンロード、二次使用、複製、再印刷、頒布を行うことができる。