症 例

術前に胸壁悪性腫瘍が疑われた肋間筋血管腫の 1 例

櫻田 明久^{*1}, 鈴木 繁紀^{*1}, 大城 雄基^{*1}
濱田 賢一^{*1}, 風間 暁男^{*2}

要 旨

【背景】胸壁血管腫は胸壁腫瘍の 1% 程度とされ、特に肋間筋血管腫は血管腫全体の 0.01% と極めて稀である。【症例】54 歳女性。検診 CT で左第 3, 4 肋間に 3.0 cm 大の胸壁腫瘤を指摘された。PET-CT では SUVmax : 2.3 の集積を認め、CT ガイド下針生検を施行したが悪性所見は認めず、経過観察となった。2 ヶ月後の経過で明らかな増大傾向は認めなかったが、デスモイド腫瘍などの悪性腫瘍を鑑別に挙げ、診断的治療目的に腫瘍摘出術を施行した。鏡視下で、病変は青紫色の壁側胸膜外の多房性結節として観察された。術中迅速病理診断では悪性所見を認めなかったが、肋間筋血管腫は局所再発例も報告されているため、第 3 肋骨を含めた胸壁切除を行った。最終病理診断では肋間筋血管腫の診断であった。【結語】肋間筋血管腫は術前に確定診断が得られない場合が多いが、術前の画像所見から血管腫を鑑別診断に上げることと、腫瘍の完全切除が重要である。

索引用語：胸壁腫瘍, 肋間筋血管腫
chest wall tumors, intercostal hemangioma

はじめに

胸壁腫瘍の中でも胸壁原発の血管腫は 1% 程度との報告がある¹⁾。中でも肋間筋原発の血管腫は血管腫の 0.01% と極めて稀であり、骨格筋原発の血管腫の中では 1.4% 程度とされる²⁾。MRI 等の画像診断が血管腫の診断の一助となるが、骨格筋原発の血管腫のうち術前診断できたものは 19% との報告もあり³⁾、胸壁原発の血管腫は稀であることからさらに診断に苦慮しうる。当院で経験した肋間筋血管腫の 1 例を報告する。

症 例

症 例：54 歳，女性。

既往歴：子宮頸部異形成。

家族歴：特記すべきことなし。

喫煙歴：5 本/日×31 年（20～51 歳）。

現病歴：検診時の胸部 CT で左胸壁腫瘤を指摘され、PET-CT で同部位に軽度の FDG 集積を認めたため、当院を紹介受診した。確定診断目的に CT ガイド下針生検（18 G 生検針）を施行したところ、組織学的に筋組織および脂肪織を認めるのみで、明らかな悪性所見は認めず、経過観察の方針となった。2 ヶ月後に MRI で評価すると、同部位に境界不明瞭な腫瘤を認め、明らかな増大傾向を認めなかったが、孤立性線維性腫瘍などの良性腫瘍の他、デスモイド腫瘍や肉腫などの悪性腫瘍を否定できないと考え、診断的治療目的に胸壁腫瘍摘出術を施行した。

入院時現症：身長 161.5 cm，体重 65 kg，血圧 104/63 mmHg，体温 36.6℃，脈拍 77/min，SpO2 96%（室内気下）。

入院時検査所見：特記すべき異常所見なし。

胸部 X 線写真：特記すべき異常所見なし。

胸部 CT，PET-CT（初診時）：左第 3, 4 肋間に 3.0 × 2.4 cm の胸壁腫瘤を認めた（Fig. 1A）。同部位に SUVmax : 2.3 の軽度集積を認めた（Fig. 1B）。

^{*1}相模原協同病院呼吸器外科

^{*2}同 病理科

原稿受付 2021 年 1 月 19 日

原稿採択 2021 年 5 月 12 日

本論文の要旨は第 38 回日本呼吸器外科学会学術集会にて発表した。

Fig. 1

A: Chest computed tomography (CT) shows an intercostal mass between the left lateral 3rd and 4th intercostal spaces. **B:** PET/CT shows increased uptake of FDG in the left chest wall mass, and the maximum standardized uptake value (SUVmax) is 2.3.

Fig. 2

A-C: Chest magnetic resonance images (MRI). **A:** T1-weighted image showing a mass with a signal intensity similar to that of adjacent skeletal muscle (arrow). **B, C:** T2- and diffusion-weighted images showing a homogenous mass with a high signal intensity (arrow).

胸部 MRI: 左第 3, 4 肋間から胸腔内へ突出する径 5.2 × 2.7 × 2.3 cm の腫瘤を認めた。腫瘤は T2 強調像および

拡散強調像で高信号, T1 強調像では筋組織と等信号を示し, 内部に造影効果を認めた (Fig. 2)。

Fig. 3

A: Thoracoscopic findings of a soft and highly vascular mass arising from the left 3rd intercostal muscle.

B: After being touched with cotton from inside the thoracic cavity, the intercostal tumor bled and bulged into the thoracic cavity.

手術所見：胸腔鏡で観察すると、腫瘍は第3肋間に、青紫色の多房性結節の集簇からなる壁側胸膜外の病変として観察された。病変は軽度緊満して胸腔内に突出し、肺との癒着は見られなかった (Fig. 3)。腫瘍の直上で皮膚切開を行い慎重に剥離を進めたが、病変は柔らかく腫瘍として触知困難であり、剥離操作に伴い溢出性の出血が見られた。その後、鏡視下でも多房性病変は地図状の扁平な病変となった。病変と思われる軟部組織の一部を迅速診断に提出したが、悪性所見は認めず、血管腫が疑われた。肋間筋血管腫は局所再発例も報告されていることから、術中所見では腫瘍の肋骨への浸潤は見られなかったものの、病変の主座であった第3肋骨を含めた10×7 cmの胸壁合併切除を行った。人工物を用いた胸壁再建は行わず、前鋸筋を含む軟部組織で胸壁欠損部を被覆した。

手術摘出標本：摘出標本において肉眼的には腫瘍の局在は明らかではないが、肋間に腫瘍は局在していた (Fig. 4A 破線)。

病理組織所見：デスモイド腫瘍や肉腫などの悪性を示唆する所見はなく、肋間筋や脂肪織に囲まれた動脈性血管成分の増生を認め、その局在と併せて、肋間筋血管腫と診断された (Fig. 4B)。

臨床経過：経過良好で術後5日目に退院となった。以降、術後9ヵ月、外来で無再発経過観察中である。

考 察

肋間組織由来の血管腫としては、肋骨原発、肋間動脈原発、肋間静脈原発の腫瘍が報告されているが、肋間筋原発の血管腫は検索可能な範囲でこれまで19例 (うち本邦7例) の報告がある^{4,22)} (Table 1)。

骨格筋原発の血管腫は良性の血管腫の0.7%であり²³⁾、その多くは上下肢に生じ、胸壁に生じるものは稀である¹⁶⁾。疫学的には、約94%の筋内血管腫は30歳以前に生じ、性差は無いとされる²⁴⁾。

骨格筋原発の血管腫は先天的な胎児性の分画異常であり、動静脈奇形の一つと考えられている。発生原因として先天性と外傷性が考えられているが、家族性に発生した報告はなく、遺伝性は否定されている²⁵⁾。Ryuらは外傷後に右前胸壁の肋間筋に発生した血管腫の一例を報告しているが²⁰⁾、外傷を契機とした発生機序としては、肉芽が外傷を契機に筋肉内に発生し、筋肉の収縮が血管組織の筋肉内への迷入や分化を促すとの報告もある²⁶⁾。本症例は54歳で診断されたが、過去のCT画像は存在せず、先天性の可能性は否定できない。過去に外傷歴はなく、その他誘因としては、発生部位が下着のバンドの位置と一致しており、持続性の圧迫が刺激になった可能性を推察した。

肋間筋血管腫の診断に関して、胸部CTでは壁側胸膜に接する造影剤で濃染する軟部腫瘍として描出され、約25%の患者では病変内のびまん性石灰化が見られたとの報告がある²⁴⁾。鑑別診断としては胸壁の感染症、骨肉腫などの骨原発腫瘍、脂肪腫、脂肪肉腫、デスモイド腫瘍、線維腫、肋間神経鞘腫、中皮腫、軟骨腫、転移性腫瘍、胸壁浸潤を伴う肺癌などが挙げられる。さらに肋間筋血管腫のMRI像としては、T1強調画像で骨格筋と同程度の信号強度を持つこと、T2強調画像で脂肪組織と類似した高い信号強度を示すが脂肪抑制像で信号強度の低下がないこと、腫瘍内部は不均一な造影像を呈することが報告されている^{13,14)}。

PET/CTではSUVmax:2.9のFDG集積を認めた肋

Fig. 4

A: Macroscopic findings of the resected tumor with the chest wall including the 3rd rib. Tumor: Yellow dashed line represents tumor localization. **B, C:** Microscopic examination of the specimen stained with hematoxylin and eosin shows irregularly dilated blood vessels with the proliferation of vessel walls and adipose tissue arising from the intercostal muscle.

骨原発の血管腫の報告はある²⁷⁾が、肋間筋血管腫についての報告は無い。これまで報告された肋間筋原発の血管腫 19 例のうち、前に画像所見で血管腫が疑われた症例は 6 例^{8, 10, 14, 15, 21, 22)}であった (Table 1)。術前の確定診断目的の生検については、術前に MRI などの検査で血管腫が疑われた場合は出血のリスクや正診率の低さ等の理由で避けるべきとの意見もあり^{6, 7, 28, 29)}、先行文献における肋間筋原発の血管腫 19 例のうち、術前に生検を施行されたのは 4 例のみ^{6, 11, 18, 19)}であるが、うち血管腫の組織学的診断が得られたのは 2 例^{18, 19)}であった。本症例では経過で画像上悪性腫瘍が否定できなかったために針生検を施行したが、確定診断は得られなかった。

一般的に、筋肉内血管腫の治療としては完全切除が第一選択とされるが、不完全切除の場合には 18% で局所再発を認めたとの報告がある^{16, 30)}。筋肉内血管腫は筋組織に混在して増生するために肉眼的に腫瘍が明確に同定しにくく、小範囲の切除では不完全切除に陥りやすいと推測される。不完全切除を避けるためには骨性胸郭との en-block の摘出が望ましいとされるが、肋骨原発の場合を

除けば、肋間筋発生血管腫の肋骨浸潤例は報告されておらず、骨性胸壁を en-block に摘出する必要性は低いとの主張もある⁹⁾。肋間筋発生血管腫では Threlkel らが唯一局所再発例を報告しているが、手術についての記載は明確ではないものの不完全切除によるものと推測する⁴⁾。

肋間筋血管腫は術前に確定診断が得られない場合が多いが、術前の画像所見から胸壁発生血管腫を鑑別診断に挙げることが重要と考える。また、本疾患は良性腫瘍であり、完全切除例での局所再発は報告されていない。よって、手術の際には、術中所見で肋骨に病変を認めない場合は肋間筋原発と考え、骨性胸郭の合併切除は必須ではなく、腫瘍を含む軟部組織の完全切除が基本方針と考える。

結 語

術前に胸壁悪性腫瘍が疑われた肋間筋血管腫の 1 例を報告した。肋間筋血管腫は術前に確定診断が得られない場合が多いが、術前の画像所見から血管腫を鑑別診断に

Table 1 Summary of the previous reported cases of resected intercostal hemangioma arising from the intercostal muscles

First author (year)	Age	Sex	Primary site (intercostal space)	Size (cm)	Radiological diagnosis	Biopsy	Combined resection	Recurrence
Threlkel (1971) ⁴⁾	8	F	N.A.	7.5	N.A.	—	—	+
Yasuda (1987) ⁵⁾	17	M	Right 1 st	5	Tumor	—	—	—
Winchester (1992) ⁶⁾	39	F	Right 5 th	5	N.A.	Normal tissue	4-6 th ribs	—
Robinson (1993) ⁷⁾	58	M	Right 3 rd	3	N.A.	—	N.A.	—
Aguiló (1994) ⁸⁾	23	F	Left 7 th	5	Hemangioma	—	—	—
Ono (1996) ⁹⁾	33	M	Right 3-6 th	9.5	N.A.	—	—	—
Kanazawa (1998) ¹⁰⁾	41	M	Right 9 th	6	Hemangioma	—	9 th rib	—
Yonehara (2000) ¹¹⁾	33	M	Left 6 th	5	Bone or cartilage tumor	Angiolipoma	7 th rib cartilage	—
Kara (2000) ¹²⁾	46	M	Right 2 nd	4	N.A.	—	—	—
Yuan (2002) ¹³⁾	44	F	Left 2 nd	3.3	N.A.	—	—	—
Kubo (2004) ¹⁴⁾	27	M	Right 7 th	6	Hemangioma	—	7 and 8 th ribs	—
Ueda (2006) ¹⁵⁾	16	M	Right 2 nd	3	Hemangioma	—	—	—
Griffo (2007) ¹⁶⁾	37	F	N.A.	15	N.A.	—	—	—
Hashimoto (2009) ¹⁷⁾	32	M	Left 4 th	1.2	Neurogenic tumor	—	—	—
Ulku (2010) ¹⁸⁾	11	F	Right 9-11 th	8.5	N.A.	Hemangioma	8-12 th ribs	—
Mei (2010) ¹⁹⁾	14	F	Right 4 and 5 th	7	Sarcoma	Hemangioma	—	—
Ryu (2011) ²⁰⁾	31	M	Right 5 th	3	N.A.	—	—	—
Dzian (2016) ²¹⁾	36	M	Left 7 and 8 th	9.5	Hemangioma	—	7-9 th ribs	—
Elbawab (2019) ²²⁾	14	M	Right 5 th	6	Hemangioma	—	5 and 6 th ribs	—
Present case (2020)	54	F	Left 3 rd	5	Malignancy	Normal tissue	3 rd rib	—

F : female, M : male, N.A. : not available

挙げることと、腫瘍の完全切除が重要である。

利益相反

本論文について申告する利益相反はない。

文 献

1. Pairolero PC, Arnold PG. Chest Wall Tumors. Experience with 100 Consecutive Patients. J Thorac Cardiovasc Surg 1985; **90**: 367-72.
2. Allen PW, Enzinger FM. Hemangioma of Skeletal Muscle. An Analysis of 89 Cases. Cancer 1972; **29**: 8-22.
3. Shallow TA, Eger SA, Wagner FB. Primary Hemangiomatous Tumors of Skeletal Muscle. Ann Surg 1944; **119**: 700-40.
4. Threlkel JB, Adkins RB Jr. Primary chest wall tumors. Ann Thorac Surg 1971; **11**: 450-9.
5. 安田雄司, 榎堀 徹, 塙 健, 小鯖 覚, 二宮和子, 畠中陸郎, 他. 原発性胸壁腫瘍の臨床的検討. 日胸外会誌 1987; **35**: 1719-27.
6. Winchester DJ, Victor TA, Fry WA. Intercostal Hemangioma Presenting as a Chest Wall Tumor. Ann Thorac Surg 1992; **54**: 145-6.
7. Robinson LA. Cavernous Hemangioma of the Intercostal Space. Ann Thorac Surg 1993; **55**: 1052-4.
8. Aguiló R, Montesinos C, Llobera M. Coexisting subdural and intercostal haemangiomata. Eur Respir J 1994; **7**: 1017-8.
9. Ono N, Yokomise H, Inui K, Wada H, Hitomi S. Intercostal Hemangioma. Thorac Cardiovasc Surg 1996; **44**: 324-5.
10. 金沢 守, 松井則親, 中村 丘, 守田知明, 兼行俊博, 有吉 功. 肋間血管腫の1例. 日臨外会誌 1998; **59**: 662-5.
11. Yonehara Y, Nakatsuka T, Ichioka I, Takato T, Matsumoto S, Yamada A. Intramuscular haemangioma of the anterior chest wall. Br J Plast Surg 2000; **53**: 257-9.
12. Kara M, Dikmen E, Dizbay Sak S, Kavukçu S. Intercostal arteriovenous hemangioma. Eur J Cardiothorac Surg 2000; **18**: 622-4.
13. Yuan Y, Matsumoto T, Miura G, Tanaka N, Emoto T,

- Kawamura T, et al. Imaging Findings of an Intercostal Hemangioma. *J Thorac Imaging* 2002; **17**: 92-5.
14. Kubo M, Moriyama S, Nogami T, Kunitomo T, Nawa S. Intercostal Hemangioma. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* 2004; **52**: 435-8.
 15. 植田信策, 相川広一, 大浦裕之, 半田政志. 肋間筋に発生した intramuscular hemangioma. *日呼外会誌* 2006; **20**: 960-4.
 16. Griffo S, Stassano P, De Luca G, Di Tommaso L, Monaco M, Spiezia S. Intramuscular Hemangioma of the Chest Wall: An Unusual Tumor. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2007; **134**: 1368-9.
 17. Hashimoto H, Oshika Y, Obara K, Takeshima S, Sato K, Tanaka Y. Intercostal venous hemangioma presenting as a chest wall tumor. *Gen Thorac Cardiovasc Surg* 2009; **57**: 228-30.
 18. Ulku R, Onat S, Avci A, Ozmen CA. Resection of intercostal hemangioma with involved chest wall and ribs: in an 11-year-old girl. *Tex Heart Inst J* 2010; **37**: 486-9.
 19. Mei L, Shi H, Che G. Intercostal hemangioma presenting with multiple metastasized lung nodules caused by pneumonia. *Thorac Cancer* 2010; **1**: 169-71.
 20. Ryu KM, Lee WA. Post-Traumatic Intramuscular Hemangioma of the Chest Wall. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2011; **44**: 458-60.
 21. Dzian A, Hamzik J. Intercostal hemangioma of the chest wall. *Kardiochir Torakochirurgia Pol* 2016; **13**: 58-60.
 22. Elbawab H, Alreshaid F, Hashem T, Alnasser A, Husain R, Aljehani Y. Intercostal Hemangioma: Case Report of a Rare Chest Wall Tumor in Childhood. *Int J Surg Case Rep* 2019; **60**: 319-22.
 23. Watson WL, McCarthy WD. Blood and lymph vessel tumors, a report of 1,056 cases. *Surg Gynecol Obstet* 1940; **71**: 569-88.
 24. Wild AT, Raab P, Krauspe R. Hemangioma of Skeletal Muscle. *Arch Orthop Trauma Surg* 2000; **120**: 139-43.
 25. Sherman JA, Davies HT. Intramuscular Hemangioma of the Temporalis Muscle. *J Oral Maxillofac Surg* 2001; **59**: 207-9.
 26. Fergusson IL. Haemangiomata of Skeletal Muscle. *Br J Surg* 1972; **59**: 634-7.
 27. Itabashi T, Emori M, Terashima Y, Hasegawa T, Shimizu J, Nagoya S, et al. Hemangioma of the Rib Showing a Relatively High 18f-FDG Uptake: A Case Report with a Literature Review. *Acta Radiol Open* 2017; **6**: 2058460117728416.
 28. Abrao FC, Tamagno M, Canzian M, Fernandez A, Bibas J, Fernandes PM, et al. Hemangioma of the Rib. *Ann Thorac Surg* 2011; **91**: 595-6.
 29. Gourgiotis S, Piyis A, Panagiotopoulos N, Panayotopoulos P, Salemis NS. Cavernous Hemangioma of the Rib: A Rare Diagnosis. *Case Rep Med* 2010; **2010**: 254098.
 30. Cohen AJ, Youkey JR, Clagett GP, Huggins M, Nadalo L, d'Avis JC. Intramuscular Hemangioma. *JAMA* 1983; **249**: 2680-2.

A case of a hemangioma arising from intercostal muscle suspected to be a malignant tumor before surgery

Akihisa Sakurada^{*1}, Shigeki Suzuki^{*1}, Yuki Oshiro^{*1}

Kenichi Hamada^{*1}, Akio Kazama^{*2}

^{*1}Division of General Thoracic Surgery, Sagamihara Kyodo Hospital

^{*2}Division of Pathology, Sagamihara Kyodo Hospital

[Background] Chest wall hemangiomas account for about 1% of chest wall tumors, and intramuscular hemangioma arising from intercostal muscle is extremely rare, accounting for 0.01% of all hemangiomas. [Case] In a 54-year-old woman, a 3.0-cm chest wall mass was found between the left 3rd and 4th ribs on examination by CT. PET/CT showed FDG accumulation by the mass (SUVmax: 2.3), and CT-guided needle biopsy was performed for a definitive diagnosis, revealing no malignant findings. During a 2-month follow-up, MRI showed that the mass was not growing, a malignant tumor such as desmoid tumor was suspected, and tumor resection was performed. The chest wall mass was a mural extrathoracic lesion consisting of a collection of bluish-purple multilocular nodules under thoracoscopic view. No malignant findings were found by intraoperative biopsy. However, according to previous reports of local recurrence of intercostal hemangiomas, chest wall resection including the third rib was performed. No malignant findings were found in the final pathological diagnosis, and the lesion was diagnosed as intramuscular hemangioma arising from intercostal muscle. [Conclusion] Although it is difficult to make a definitive diagnosis of intercostal hemangioma before surgery, it is important to list hemangioma as a differential diagnosis based on preoperative radiological findings and to perform complete resection of the tumor.