甲状腺血管腫の1例

細 野 研 二 赤 羽 誉
岡 安 唯 伊 藤 妙 子

要旨：一般的に血管腫の半数以上は頭頸部領域に生じるとされているが、甲状腺の血管腫は非常にまれであり、本邦での過去の報告は検索し得た限りで16例を認めるのみである。今回われわれは甲状腺血管腫を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症例は48歳、女性。前頸部腫瘍を主訴に当科を受診した。画像検査で甲状腺右葉に境界明瞭、内部やや不均一で被膜に石灰化を伴う径7cmの腫瘍を認めた。穿刺吸引細胞診では良性の結果であったが、大きさや画像検査所見から悪性を疑い、甲状腺右葉峡部切除術、D1郭清術を行った。摘出標本は厚い被膜に覆われた腫瘍で、病理組織検査で海綿状血管腫と診断した。

キーワード：甲状腺、血管腫

Summary A case of cavernous hemangioma of the thyroid gland:

Kenji Hosono, Homare Akahane, Tadao Okayasu and Taeko Ito. Department of Otolaryngology, Nissay Hospital, Osaka

Hemangioma of the thyroid gland is quite rare. We report a case of cavernous hemangioma of the thyroid gland. A 48-year-old female visited our hospital with an anterior neck mass. A massive mass was palpable in the right lobe of the thyroid. CT scanning revealed a mass measuring 7 cm with calcifications in the right lobe of the thyroid and the trachea was shifted to the left. Thyroid hormones were within the normal ranges. Although aspiration biopsy of the mass was negative, right hemithyroidectomy and D1 neck dissection were performed under a diagnosis of suspected thyroid carcinoma. Histopathological examination of the surgical specimen showed cavernous hemangioma in the thyroid gland. The patient was discharged without complications. To our knowledge, only 16 cases of hemangioma of the thyroid have ever been reported in Japan. An analysis of the previous reports showed that fine needle aspiration cytology (FNAC) was performed in 12 cases, of which 8 cases were blood only. Furthermore, they had often poor characteristic findings on ultrasound scans, computed tomography (CT) scans, and magnetic resonance imaging (MRI). Therefore, preoperative diagnosis of cavernous hemangioma of the thyroid is difficult, and in fact, a diagnosis was made before surgery in only 3 of the cases. If a large amount of fresh blood was aspirated before surgery, we should consider the possibility of hemangioma of the thyroid. There are some reports that surgery of hemangioma of the thyroid results in a large amount of blood, thus surgery should be performed with great care.

Key words: thyroid, hemangioma

[Received Mar. 4, 2014, Accepted Oct. 24, 2014]

はじめに

血管腫は、境界不明瞭な血管の増殖性病変で、多くは皮膚および皮下組織に認められ、半数以上は頭頸部領域に生じるとされているが、甲状腺の血管腫は非常にまれである。今回われわれはまれな甲状腺血管腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症例提示

症例：48歳，女性。

主訴：前頸部腫瘍。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

図1 頸部超音波検査

甲状腺右葉全体に内部不均一な充実性腫瘍を認め、ドプラ像では腫瘍の大部分に血流シグナルを認めなかった。

現病歴：2007年頃健診時に前頸部腫瘍を指摘されたが放置していた。その後徐々に増大するため、2012年6月当科を受診した。

初診時所見：前頸部に表面平滑で可動制限のない、巨大な硬い腫瘍を触知した。頸部リンパ節腫脹は認められなかった。その他、口腔および耳鼻咽喉頭領域に異常を認めなかった。

血液検査所見：甲状腺機能は正常範囲内（FT3：3.07pg/ml，FT4：1.00ng/dl，TSH：1.323μIU/ml）で、血中サイログロブリン値は281.0ng/ml（基準値：<30ng/ml）と上昇していた。抗サイログロブリン抗体は陰性（19.0IU/ml），抗TPO抗体は陽性（36.0IU/ml）であった。

頸部超音波検査：甲状腺右葉に径約7cmの内部不均一な充実性の腫瘍を認めた。ドプラ像では腫瘍の大部分に血流シグナルを認めなかった（図1）。

頸部造影CT検査：甲状腺右葉に境界明瞭で被膜付近に微小石灰化を伴う充実性腫瘍を認めた。腫瘍内部は不均質に造影され、腫瘍により喉頭および気管は左側へ大きく圧排されていた（図2）。

穿刺吸引細胞診：穿刺時は硬い印象で、血液はほとんど吸引されず、結果はclass IIで悪性所見は認めなかった。

診断および治療：腫瘍の大きさ、画像検査所見、触診および穿刺時の硬さより甲状腺悪性腫瘍を考え、2012年7月全身麻酔下に甲状腺右葉峡部切除術を行った。また腫瘍が大きいいため、気管周囲のリンパ節は正確な術前評価が難しく、D1郭清術（左Ⅲを除く）も行った。

手術所見：通常の甲状腺手術と同様、前頸部皮膚に襟状切開をおき（図3）、郭清組織を甲状腺右葉峡部と共にen-blocに摘出した。腫瘍は周囲組織への明らかな癒着や浸潤を認めず、右反回神経は温存し、出血量は365ml，腫瘍サイズは70×70×55mm

図2 頸部CT

甲状腺右葉に気管を左側へ圧排する充実性腫瘍を認めた。被膜付近に微小石灰化を認め、内部は不均質に造影された。

大であった (図 4)。

病理組織：HE 染色で、厚い線維性被膜に覆われ内部に広範な壊死巣を有し、不規則な血管増生を伴う腫瘍を認めた。また腫瘍に圧排され萎縮した正常甲状腺組織を一部に認めた。CD31 染色では血管内皮細胞が陽性で、細胞増殖能の指標となる MIB-1 陽性率は数%の結果であった。上皮性マーカーである AE1/AE3 染色は陰性であり、悪性所見も認められず、以上より甲状腺海綿状血管腫と診断した (図 5)。

術後経過：声帯麻痺等の合併症は認められず、順調に経過し術後 7 日目に退院となった。退院後も甲

状腺機能に異常を認めていない。

考 察

一般的に血管腫の約 65% は頭頸部領域に生じるとされているが¹⁾、甲状腺に発生するものは非常にまれである。過去の報告では甲状腺疾患手術例の 0.05%²⁾~0.17%³⁾とされており、われわれが検索し得た範囲では、本邦での文献的報告は 16 例²⁻¹⁵⁾のみである (表 1)。

本症例を含めた 17 例の一覧を表 1 に示す²⁻¹⁵⁾。これらを検討した結果、年齢は 4 歳~79 歳 (平均年齢 39.8 歳) と様々で、男女比は 8:9 とほとんど差を認めなかった。術前の甲状腺機能は大部分の症例で正常であり、2 例でのみ機能低下を認めた。発生部位は右葉に多い傾向があり、腫瘍サイズは 2 cm 程度から 10 cm を超えるものまで報告されており、触診所見では弾性硬が最も多い結果であった。軟らかい腫瘍が少ない原因として、北村ら⁸⁾は腫瘍が長期間存在した場合に腫瘍内の血栓、間質および被膜の石灰化や線維化などにより硬度が増すためと考察している。

病理学的には、体表の病変を中心に以前血管腫とされてきた病態は、1996 年に ISSVA (the International Society for the Study of Vascular Anomalies) 分類¹⁶⁾が提唱されて以降、内皮細胞増殖の有無により、血管性腫瘍と血管奇形とに分類されるこ

図 3 術前所見
喉頭および気管は腫瘍に圧排され大きく左側へ偏位していた。

a

b

図 4 摘出標本

a. 腫瘍サイズ 70×70×55mm

b. 線維性被膜に覆われており、内部に広範な壊死巣を伴っている。

図5 病理組織学的所見

- a. HE 染色（弱拡大）：線維性被膜（矢印）に覆われており，一部に圧排された正常甲状腺組織（※）を認める。
- b. HE 染色（強拡大）：大小不規則な血管増殖を認める。
- c. CD31 染色：血管内皮細胞が染色されている。
- d. MIB-1 染色：数%の陽性率であった。

とが多くなっている。しかし本邦では体表の病変以外はまだ従来の疾患分類が用いられていることも多く，この分類に従うと，17例の内訳は海綿状血管腫が13例，静脈性血管腫が3例，毛細管性血管腫が1例であった。

甲状腺血管腫の特徴的な画像所見として，超音波検査では，低エコー域を中心としたやや不均一で境界明瞭な腫瘍で，ドプラ像で豊富な血流を認め，一部 strong echo を伴うとされている。CT 検査では，腫瘍全体に良好な造影効果を認め，点状から塊状の石灰沈着を伴うことが特徴であり，中には静脈石の存在が疑われる例も存在する。MRI 検査では，T1 強調像で低から等信号，T2 強調像で高信号を呈する腫瘍で，良好な造影効果を示し，血流速度に応じて周囲および内部に flow void を認めることがある。また過去の7例で甲状腺シンチグラフィ（ ^{123}I ， ^{131}I ）が行われており，腫瘍の部位に一致した集積低下像（cold area）を認め，診断への有用性が述べられている。その他，柄松ら¹⁰⁾は術前に血管腫を疑い，血液プールシンチグラフィ（ $^{99\text{m}}\text{Tc}$ erythrocyte blood-pool imaging）と栄養動脈（feeding artery）を同定するために DSA（Digital subtraction angiography）を施行しているが，侵襲や医療費の

問題から必ずしも一般的とは言えない。

しかしながら特徴的な画像所見を認めない場合，術前に甲状腺血管腫を疑うことは必ずしも容易ではない。17例について術前診断を中心に整理したものを表2に示す。術前に血管腫を疑ったもの（血管腫疑い群）は3例しかなく，腺腫を疑ったもの（腺腫疑い群）が6例，悪性を疑ったもの（悪性疑い群）が8例と最多であった。それぞれの腫瘍最大径の中央値を比較してみると，血管腫疑い群が28.7mmと最も小さく，腺腫疑い群が54.6mm，悪性疑い群が76.6mmと最大であり，腫瘍が大きくなるにつれ悪性が疑われている傾向を認めた。また穿刺吸引細胞診を行った場合でも，診断は困難なことが多い。穿刺吸引細胞診は17例中13例で行われており，全体では約6割（8/13例）が血液成分のみという結果であった。ただ血液成分のみが採取された割合は，悪性疑い群，腺腫疑い群が共に50%であるのに対し，血管腫疑い群では100%であり全例で多量の血液が吸引されていた。血管腫疑い群の病理組織型はすべて静脈性血管腫で，画像検査では豊富な血流を反映した所見や静脈石の存在など，血管腫の典型像を認めていた。

悪性が疑われた理由としては，腫瘍の大きさや境

表 1 本邦における甲状腺血管腫の報告一覧

症例	著者	報告年	年齢	性別	部位	触診所見	細胞診	術前診断	手術	出血量	腫瘍サイズ(mm)	病理分類
1	沖山 ²⁾	1966	57	女	右	弾性硬	—	腺腫	核出	—	35×20×15	海綿状
2	小松原ら ⁴⁾	1976	48	女	左	弾性硬	血液	腺腫	葉切除	—	90×60×50	海綿状
3	奥野ら ⁵⁾	1981	7	男	峡部	不明	—	腺腫	核出	—	エンドウ/大豆大	毛細管性
4	上村ら ⁶⁾	1982	59	男	左	弾性硬	—	悪性疑い	葉切除+D1	—	110×80×50	海綿状
5	石田ら ⁷⁾	1982	57	女	右	弾性硬	良性	悪性疑い	葉切除	—	80×65×30	海綿状
6	石田ら ⁷⁾	1982	4	男	錐体葉	軟	良性	腺腫	核出	—	18×9×3	海綿状
7	石田ら ⁷⁾	1982	46	男	右	弾性硬	良性	悪性疑い	葉切除	輸血1000ml	140×100×95	海綿状
8	横田ら ³⁾	1991	64	女	右	弾性硬	血液	悪性疑い	葉切除	—	72×60×40	海綿状
9	北村ら ⁸⁾	1993	21	男	右	軟	血液	悪性疑い	葉切除	220g	55×30×20	海綿状
10	宅野ら ⁹⁾	1994	33	女	右	弾性硬	良性	腺腫	葉切除	—	40×50×60	海綿状
11	柄松ら ¹⁰⁾	1995	17	男	右	弾性硬	血液	血管腫	葉切除	200ml	30×20	静脈性
12	鈴木ら ¹¹⁾	2004	28	女	右	軟	血液	血管腫	葉切除	少量	約 25	静脈性
13	Kumamotoら ¹²⁾	2005	56	女	右	弾性硬	血液	腺腫	葉切除	—	70×60	海綿状
14	Kano ら ¹³⁾	2005	21	男	右	不明	—	悪性疑い	葉切除	—	55×30×20	海綿状
15	松原ら ¹⁴⁾	2008	31	女	右	弾性硬	血液	血管腫	核出	25g	23×31×22	静脈性
16	川崎ら ¹⁵⁾	2010	79	男	右	軟	血液	悪性疑い	葉切除	10ml	24×31×18	海綿状
17	本例	2013	48	女	右	硬	良性	悪性疑い	葉切除	365g	70×70×55	海綿状

表 2 甲状腺血管腫 17 例のまとめ

術前診断	腫瘍最大径 中央値 (mm)	細胞診結果： 血液のみの割合	血管腫の 病理組織型	画像検査所見
血管腫 (n = 3)	30 (25 ~ 31)	100% (3/3) (多量の血液)	すべて静脈性	豊富な血流所見 均一な造影 静脈石
悪性疑い (n = 8)	72 (31 ~ 140)	50% (3/6)	すべて海綿状	境界不明瞭 不整形 不均一な造影 複数の石灰化像
腺腫 (n = 6)	60 (18 ~ 90)	50% (2/4)	海綿状 (n = 5) 毛細管性 (n = 1)	境界明瞭 表面平滑 石灰化像

界不明瞭、不整形といった画像所見に加えて、急速に増大し強い圧迫症状⁷⁾や、気管狭窄または声帯麻痺による呼吸困難^{3,6)}をきたすなどの臨床経過が挙げられる。悪性疑い群では全摘術が行われたものではなく、全例で葉切除が行われていた。ただ D1 郭清術が行われたものは本例を含め 2 例しかなく、残りの 6 例では郭清術は省略されていた。郭清が省略された理由は、術中迅速病理検査で悪性が否定されたため (3 例)、術中に栄養動脈の処理により腫瘍の縮小を認め血管腫が疑われたため (2 例)、術中に

甲状腺周囲のリンパ節腫脹を認めなかったため (1 例) であった。本症例では、術前に悪性腫瘍を考え、腫瘍のサイズが大きいこともあり、術中迅速病理検査で悪性所見を認めない場合でも、悪性を完全に否定することは困難と考えたため、術中迅速病理検査は行わなかった。

甲状腺血管腫の治療としては、甲状腺良性腫瘍の取扱いに準じて手術されるのが一般的である。通常予後は良好と考えられており、全例で再発を認めていない。治療にあたっては、手術の際、上または下

甲状腺動脈の処理により腫瘍が縮小した報告^{3,7,10)}もあるが、中には易出血性の場合がある。石田ら⁷⁾は総出血量の記載はないが1000mlの輸血を要したと報告しており、手術の際には出血のコントロールも重要となる。

今回の症例では腫瘍内部に広範な壊死巣を伴っていたこともあり、頸部超音波検査、CT検査では特徴的な血流亢進所見が認められず、また穿刺吸引細胞診では血液がほとんど吸引されなかったものと考えられる。その他、一部に石灰化を伴っていたこと、穿刺時に硬い抵抗を感じたことも悪性を疑う要因となった。

今後、血流が豊富で、穿刺吸引細胞診施行時に多量の血液が吸引される際には、甲状腺血管腫の可能性も念頭に置く必要があり、その手術を行う際には、出血のリスクを十分に考えておくことも重要である。

ま と め

1. 非常にまれな甲状腺血管腫の1例を経験した。
2. 穿刺吸引細胞診を行う際、多量の血液成分が吸引される場合には、本症の可能性も念頭におくべきである。
3. 手術の際には出血のリスクを考えておく必要がある。

本論文の要旨は第24回日本頭頸部外科学会学術講演会(2014年1月、高松市)において報告した。

著者は申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 1) Shpitzer T, Noyek AM, Witterick I, et al: Noncutaneous cavernous hemangiomas of the head and neck. *Am J Otolaryngol* 18: 367-374, 1997.

- 2) 沖山文雄：甲状腺血管腫. 信州医誌, 15: 231-235, 1966.
- 3) 横田 徹, 石田常博, 横江隆夫, 他：反回神経麻痺を伴った甲状腺血管腫の1例と文献的考察. *日臨外医会誌*, 52: 2876-2880, 1991.
- 4) 小松原正吉, 清水康広, 西岡 聖, 他：甲状腺に原発した海綿状血管腫の1例. *外科*, 38: 938-940, 1976.
- 5) 奥野 豊, 鈴木俊輔, 加藤典博, 他：甲状腺機能低下症を伴った甲状腺血管腫の1例. *日外会誌*, 82: 1390-1393, 1981.
- 6) 上村邦紀, 川口英敏, 木本明博：多彩な組織像を呈した甲状腺血管腫の1例. *外科診療*, 24: 1001-1006, 1982.
- 7) 石田常博, 佐藤治夫, 細野 治：甲状腺血管腫の3治験例と文献的考察. *日臨外医会誌*, 44: 688-694, 1983.
- 8) 北村 裕, 三村 孝, 山下共行, 他：甲状腺血管腫の1例. *内分泌外科*, 10: 225-229, 1993.
- 9) 宅野 洋, 猿井 宏, 松井郁雄, 他：甲状腺機能低下症に合併した甲状腺海綿状血管腫の1症例. *岐阜内科医会誌*, 7: 75-83, 1994.
- 10) 柄松章司, 安藤重満, 榊原堅式, 他：画像診断にて術前診断が可能であった甲状腺血管腫の1例. *内分泌外科*, 12: 371-374, 1995.
- 11) 鈴木政彦, 宮下久夫, 笹村佳美, 他：甲状腺血管腫の1例. *耳鼻・頭頸外科*, 76: 215-218, 2004.
- 12) Kumamoto K, Sugano K, Hoshino M, et al: Cavernous hemangioma of the thyroid. *Thyroid*. *Thyroid* 15: 1199-1201, 2005.
- 13) Kano M, Kameyama K, Hosoda Y, et al: A cavernous haemangioma of the thyroid gland. *J Laryngol Otol* 119: 828-830, 2005.
- 14) 松原真美, 庄司和彦, 高橋淳人, 他：甲状腺血管腫の1例. *天理医紀*, 11: 92-99, 2008.
- 15) 川崎由香里, 杉野圭三, 西原雅浩, 他：甲状腺血管腫の1例. *日臨外会誌*, 72: 579-583, 2011.
- 16) Enjolras O: Classification and management of the various superficial vascular anomalies: hemangiomas and vascular malformations. *J Dermatol* 24: 701-710, 1997.