

《症例報告》

¹¹¹In-oxine による標識血小板シンチグラフィおよび ^{99m}Tc-HSA-D シンチグラフィが有用であった Kasabach-Meritte Syndrome を呈した前縦隔内血管腫の 1 例

浅野 雄二* 石井 勝己* 鷺内 隆雄* 菊池 敬**
神宮司公二** 太田 幸利** 早川 和重*

要旨 原因不明の血小板減少を呈した 12 歳の女兒に対し、^{99m}Tc-HSA-D による血液プールシンチグラフィと ¹¹¹In-oxine による血小板シンチグラフィが施行され、本症例の血小板減少が前縦隔内の血管腫による Kasabach-Meritte syndrome が示唆された。血管腫の部位診断、病態の把握および治療方針の決定において、^{99m}Tc-HSA-D による血液プールシンチグラフィと ¹¹¹In-oxine による血小板シンチグラフィが、非常に有用であったので報告する。

(核医学 40: 445–449, 2003)

I. はじめに

¹¹¹In-oxine による標識血小板シンチグラフィは、血栓の存在を視覚的に評価することが可能な検査である¹⁾。また、^{99m}Tc-HSA-D による血液プールシンチグラフィは、血管内の血流動態や機能に関する情報を得ることができる検査である²⁾。加えて ^{99m}Tc-HSA-D は血管腫内に pooling されることから、血管腫の局在および確定診断に有用であるという報告もある^{3–5)}。

われわれは、著しい血小板減少をきたした臨床経過から Kasabach-Meritte Syndrome が疑われた血管腫の局在診断および治療方針の決定に、^{99m}Tc-HSA-D を用いた血液プールシンチグラフィおよ

び ¹¹¹In-oxine による標識血小板シンチグラフィが有用であった 1 例を報告する。

II. 症 例

12 歳 女兒

[主訴] 発熱

[既往歴] 特記すべきことなし (正期産児)

[現病歴] 平成 2 年 6 月 25 日 (5 歳時)、39.4°C の発熱のため近医を受診し、感冒として通院加療したが、軽快しないため他院を受診した。胸部単純 X 線写真 (Fig. 1) で CTR が 74% と拡大していたため、平成 2 年 6 月 28 日に当院小児科に紹介入院した。入院後の心臓超音波検査で、大量の心嚢液貯留が認められたため、心嚢液穿刺を施行した。心嚢液の性状は膿性で、細菌培養検査でブドウ球菌が検出された。血液検査所見でも炎症反応があり、細菌性心外膜炎と診断し、心嚢ドレナージおよび抗生剤投与を行った。その後全身状態は安定し、平成 2 年 7 月 12 日の胸部単純 X 線写真 (Fig. 2) で CTR は 54% に改善し、心臓超音波検査でも心嚢液貯留は消失し、炎症反応も陰性化し

* 北里大学医学部放射線科学

** 同 附属病院放射線部核医学検査室

受付: 15 年 3 月 3 日

最終稿受付: 15 年 5 月 28 日

別刷請求先: 神奈川県相模原市北里 1-15-1

(☎ 228-8555)

北里大学医学部放射線科

浅野 雄二

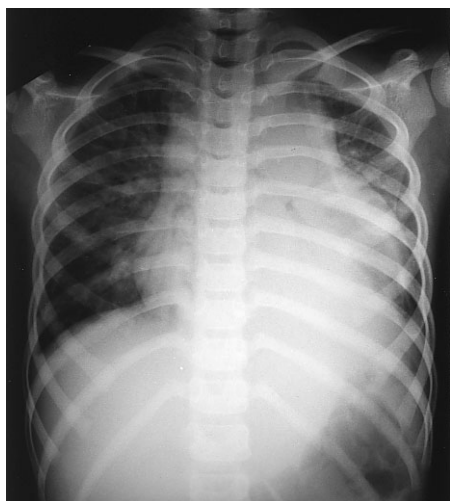


Fig. 1 A film of x-ray of the chest shows increase of the cardiothoracic ratio (CTR).

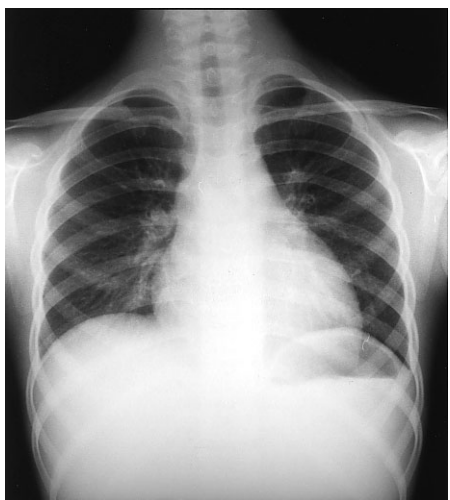
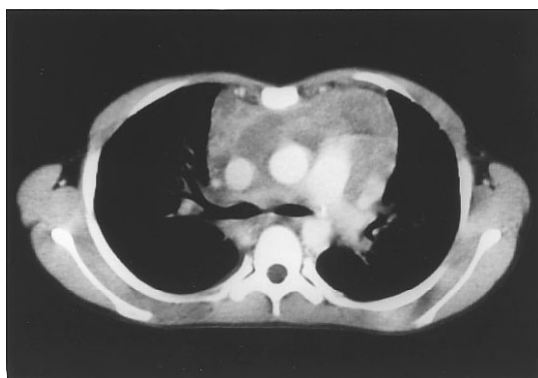
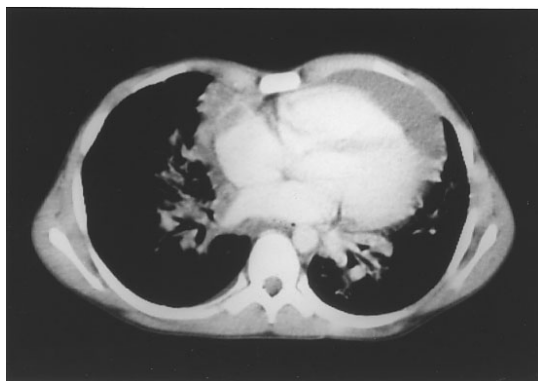


Fig. 2 A film of x-ray of the chest after the pericardial drainage shows that the increase of the CTR has returned to normal.

ため平成2年7月31日退院した。退院後4年目に再び心嚢液貯留による心拡大が出現したため、平成6年8月15日(9歳時)に再入院となった。入院後、再度心嚢ドレナージを施行した。この心嚢液の性状は淡血性で、細菌培養は陰性であった。同時に生検した心嚢膜の病理組織診断は慢性



a



b

Fig. 3 Chest computed tomography with contrast-agent (a and b). Soft tissue lesion with enhancement (arrow) is found on the right side of the heart, where was anterior mediastinum, and pericardial effusion.

心外膜炎であった。加療により全身状態および心拡大は改善し、平成6年8月27日に退院した。外来経過中の平成7年5月20日(10歳時)に、再度胸部単純X線写真で再び心拡大がみられ、胸部造影CT (Fig. 3-a, b) を施行した。心臓右側に造影剤による増強効果を示す前縦隔腫瘍と大量の心嚢液貯留が認められた。前縦隔腫瘍および再発する心嚢液貯留の原因精査のため、前縦隔腫瘍の生検術を検討したが両親の同意が得られず、また明らかな自覚症状もなく日常生活に支障がなかったため、外来で経過観察した。経過中に前縦隔腫瘍の大きさと性状に変化は認められなかった。平成9

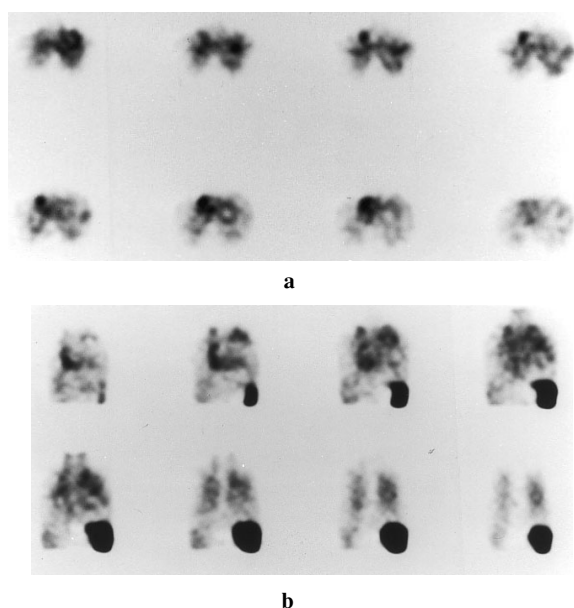


Fig. 4 ^{111}In -oxine-labeled platelet (37 MBq) scintigraphy with SPECT of the chest 2 days after the intravenous administration of the tracer. (a) Axial and (b) coronal images show increased accumulation in the right site of the anterior mediastinum.

年 3 月の血液検査で、血小板が $2.4 \text{ 万}/\mu\text{l}$ と低下していた。平成 9 年 3 月 11 日 (12 歳時) に入院した。入院後から持続的に血小板は低下し続けた。血小板の低下に対してグロブリン投与および血小板輸血を行ったが、明らかな効果は得られなかった。血小板減少の原因検索のため、平成 9 年 7 月 31 日に ^{111}In -oxine による標識血小板シンチグラフィ (Fig. 4-a, b) を施行した。 ^{111}In -oxine 標識血小板を 37 MBq 投与し 2 日後に SPECT 像を撮像した。 ^{111}In -oxine 標識血小板シンチグラフィでは、胸部造影 CT で確認された前縦隔腫瘍への標識血小板の遊走と消費を示唆する RI の異常集積が認められた。また脾臓にも標識血小板の集積と腫大がみられ、脾機能亢進が示唆された。標識血小板シンチグラフィ所見から、前縦隔腫瘍は Kasabach-Meritte Syndrome を呈した血管腫である可能性と脾機能亢進により血小板減少が生じていると推察された。 Kasabach-Meritte Syndrome の治



Fig. 5 Aortic angiography shows no tumor stain.

療に対しては放射線療法が有効であるという報告⁶⁾があることから、平成 9 年 11 月 5 日から放射線療法 ($15 \text{ Gy} \times 5$ 日間) が施行された。しかし血小板の上昇は認められず効果がないと判断され、平成 9 年 11 月 5 日に放射線療法を一度終了した。また血小板シンチグラフィで脾臓へのトレーサ集積が増加していたことから脾機能亢進が疑われ、脾機能亢進による血小板減少の治療に対して、平成 10 年 1 月 26 日に脾臓塞栓術が施行された。同時に胸部大動脈造影 (Fig. 5) も施行されたが、明らかな腫瘍濃染は認められなかった。しかし術後の血小板数の改善はなく、脾臓塞栓術の効果は認められなかった。さらなる前縦隔腫瘍の質的診断のために平成 10 年 2 月 16 日、 $^{99\text{m}}\text{Tc}$ -HSA-D による血液プールシンチグラフィ (Fig. 6-a, b) を施行した。 $^{99\text{m}}\text{Tc}$ -HSA-D を 740 MBq 投与し全身像を 30 分後、6 時間後と経過を追って撮像した。血液プールシンチグラフィでは、心臓右側の前縦隔にトレーサ静注後から 6 時間の間に時間とともに緩徐にトレーサ集積増加が認められた。その後もほとんど変化はなく前縦隔腫瘍が血小板を消

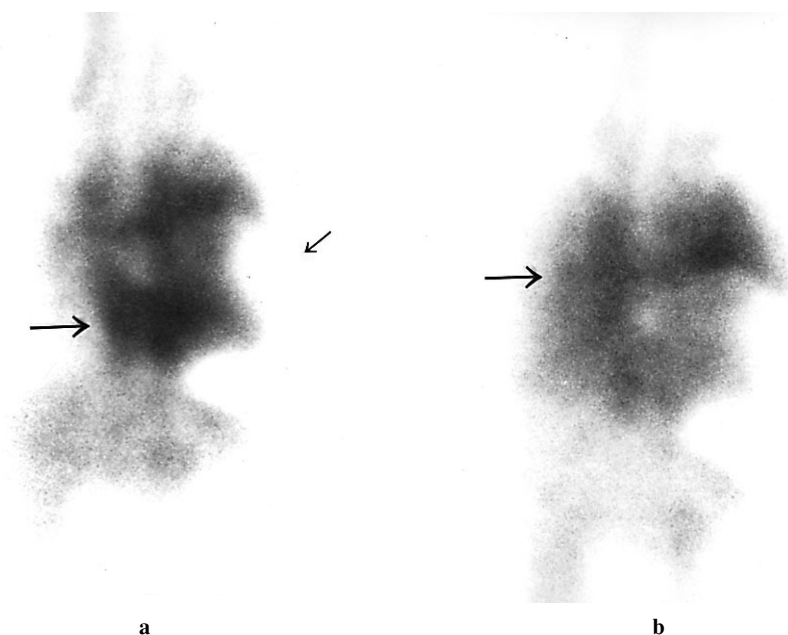


Fig. 6 ^{99m}Tc -HSA-D scintigraphy (740 MBq) 30 min (a) and 360 min (b) after the intravenous administration of the tracer. (a) Early image shows slightly accumulation (arrow) in the right site of the mediastinum and no accumulation surrounding the heart (small arrow), indicating the extent of pericardial effusion. (b) Delay image shows increased accumulation (arrow) in the right site of the mediastinum.

費していると考え、Kasabach-Meritte Syndrome が疑われ、さらに平成 10 年 3 月 3 日からステロイド療法が開始され、また放射線療法 (5 日間 35 Gy) が再開された。フィブリノーゲンは正常化したが、血小板減少、FDP の高値は持続、さらに濃厚血小板輸血も行ったが改善しなかった。その後家族の希望があり平成 10 年 5 月 28 日に他院へ転院した。転院後濃厚赤血球、血小板輸血が行われ、心嚢液貯留に対しては心嚢ドレナージも行われた。その後全身状態は改善し、1 か月後に行われた胸部造影 CT では明らかな縦隔腫瘍は認められなかった。

III. 考 察

本症例は、前縦隔に腫瘍があるという局在部位診断が CT でつきながらも、その質的診断が困難であった症例である。血管造影検査では血管腫内の血流動態がきわめて遅いため、腫瘍そのものの

造影効果を捉えることができなかった。心プールシンチグラフィを繰り返し撮像し、遅延像を撮影することで、本症例の腫瘍内のきわめて遅い腫瘍血管の病態を捉えることができた。また、患者がその臨床経過中に血小板減少をきたし、血小板の消費部位同定のために行われた血小板シンチグラフィで、造影 CT 検査で造影効果が得られた前縦隔腫瘍部に一致した RI 集積がみられ、同部での血小板消費が示唆された。以上の 2 種の核医学検査所見により、その後の治療方針を決定することができた。肝脾腫もあったため、血小板消費に対する治療として初めに脾臓の部分的塞栓術が施行されたが、血小板減少は改善しなかった。そのため、血小板シンチグラフィで RI 集積が認められた前縦隔腫瘍部での血小板消費に対する治療として放射線療法が選択された。他院転院後に行われた胸部造影 CT では、前縦隔腫瘍は消失していた。また血小板減少も改善し、臨床経過から前縦

隔腫瘍は血管腫であり、血管腫内で血小板が消費されて Kasabach-Meritte Syndrome を呈していたと推察された。

文 献

- 1) 津田隆敏, 久保田昌宏, 熊岡構一, 岩窪昭文, 志藤光男, 森田和夫, 他: ¹¹¹In-oxine 標識血小板シンチグラフィを用いた心腔内および動静脈血栓の検索. 臨床と研究 1998; 65: 273-286.
- 2) 鳥塚莞爾, 玉木長良, 米倉義晴, 西澤貞彦, 佐々木康人, 井上登美夫, 他: 心・血管系イメージング用新放射性テクネチウムヒト血清アルブミン(D) ^{99m}Tc 注射液の臨床的有用性の評価. 核医学 1998; 25: 1201-1213.
- 3) 浅野雄二, 石井勝己, 鷺内隆雄, 青木由紀, 矢内原久, 早川和重: ^{99m}Tc-HSA-D を用いた出血シンチグラフィが出血部位の同定に有用であった回腸 capillary hemangioma の 1 例. 核医学 2001; 38: 219-222.
- 4) 浅野雄二, 石井勝己, 鷺内隆雄, ウッドハムス玲子, 菊池 敬, 神宮司公二, 他: ^{99m}Tc-HSA-D を用いた血液プールシンチグラフィが全身軟部組織内に多発する海綿状血管腫の局在診断に有用であった 1 例. 臨床核医学 2002; 35: 19-21.
- 5) Murata Y, Yamada I, Umehara I, Shibuya H: The use of three-phase scintigraphy for diagnosing hemangiomas of the extremities. A clinical evaluation. *Clin Nucl Med* 1997; 22: 372-375.
- 6) Miller JG, Orton CI: Long term follow-up of a case of Kasabach-Meritte syndrome successfully treated with radiotherapy and corticosteroids. *British J Plastic Surgery* 1992; 45: 559-561.

Summary

Clinical Evaluation of ¹¹¹In-Oxine-Labeled Platelet and ^{99m}Tc-HSA-D Scintigraphies in Kasabach-Meritte Syndrome Associated with Anterior Mediastinal Hemangioma: Case Report

Yuuji ASANO*, Katsumi ISHII*, Takao SAGIUCHI*, Kei KIKUCHI**, Kouji JINGUJI**, Yukitoshi OHTA** and Kazushige HAYAKAWA*

*Department of Radiology, Kitasato University School of Medicine

**Division of Nuclear Medicine, Kitasato University Hospital

A 12-year-old girl presented with Kasabach-Meritte syndrome associated with anterior mediastinal hemangioma. ¹¹¹In-oxine-labeled platelet scintigraphy and ^{99m}Tc-HSA-D scintigraphy were very useful for the diagnosis and evaluation of this condition.

Key words: Indium-111-oxine-labeled platelet, Technetium-99m-human serum albumin diethylene triamine pentaacetic acid (^{99m}Tc-HSA-D), Kasabach-Meritte syndrome, Anterior mediastinum, Hemangioma.