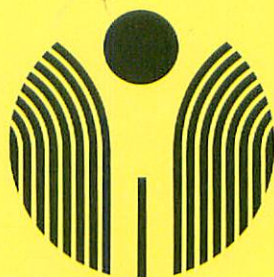


JSPR

Vol.17 No.3 2001

Journal of
Japanese Society of Pediatric Radiology

日本小児放射線学会雑誌



特集／小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療

原著論文

症例報告

日小放誌
J.J.S.P.R.

日本小児放射線学会



Journal of Japanese Society of
Pediatric Radiology

JJSPR
VOL.17 NO.3
2001

Edited by

Eiichi Kohda, M.D. Noriko Aida, M.D.
Teruyoshi Amagai, M.D. Kazuteru Kawasaki, M.D.
Hiroyuki Kobayashi, M.D. Masato Takase, M.D.

CONTENTS

Special Articles *Diagnostic imaging and radiation therapy for children with abdominal tumor*

- Introduction Kimio Kanegawa3
1. Imaging Diagnosis of Pediatric Abdominal Tumor
—liver, gall bladder, pancreas, intestine— Masanori Nishikawa4
2. Diagnostic Imaging for Pediatric Radiation Oncology Hidekazu Masaki12
3. Nuclear Medicine for Pediatric Abdominal Tumors Chio Okuyama, et al.25
4. Imaging Characteristics of Abdominal Tumor
—Adrenal Gland and Genitourinary Tract— Shunsuke Nosaka, et al.33

State of the Art

- Evaluation of Impalpable Testis with MRA Imaging
..... Yoshiharu Satoh, et al.47

Case Report

- Percutaneous Cystgastrostomy and Balloon Dilatation for a Pediatric Patient with
Pancreatic Pseudocyst—A case report— Osamu Miyazaki, et al.52



目 次

特集 小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療

- 特集を企画するにあたって金川公夫3
1. 小児腹部腫瘍の画像診断—肝・胆・膵・消化管
.....西川正則4
2. 小児放射線治療のための画像診断
.....正木英一12
3. 小児腹部腫瘍の核医学診断
.....奥山智緒, 他25
4. 小児腹部腫瘍の画像診断—副腎・泌尿生殖器—
.....野坂俊介, 他33

原 著 論 文

- MRAを用いたImpalpable testisの部位診断法
.....佐藤嘉治, 他47

症 例 報 告

- バルーン拡張併用経皮経胃嚢胞ドレナージが有用であった膵仮性嚢胞の1例
.....宮崎 治, 他52

特集

小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療 Diagnostic imaging and radiation therapy for children with abdominal tumor

特集を企画するにあたって

金川公夫

兵庫県立こども病院 放射線科

Kimio Kanegawa

Department of Radiology, Kobe Children's Hospital

小児の腹部腫瘍は比較的良好に遭遇する疾患であり、画像診断が診断や治療法の選択に重要な役割を果たしている。超音波検査が第一選択の検査法として行われ、さらにCT、MRIといった非侵襲的検査で腫瘍の情報が詳しくわかるようになり、血管造影はinterventionの目的以外にはほとんど行われなくなるなど、術前検査の適応も変化してきた。核医学検査ではMIBGシンチグラフィの登場で神経芽腫の診断や治療効果判定を容易に行うことが可能になった。また、今後、造影MRAがある程度、血管造影の代役を果たす可能性や腫瘍の抗癌剤耐性の把握に有用な^{99m}Tc-MIBIの小児への応用などの新しい技術も期待される。放射線治療においても粒子線治療が成人では施行されつつあり、いずれ小児にも広く応用されることになると思われ、新しい局面を迎えつつある。

今回、小児腹部腫瘍の画像診断を再整理するために特集を企画した。小児腹部腫瘍の画像診断はいくつかの教科書に記載されているが、超音波検査、CT、MRIについては詳しく記載されていても、核医学や放射線治療に関する画像診断まで記載されているものはほとんどないため、これらの項目を含めた特集にした。

腹部腫瘍の画像診断、核医学診断、放射線治療のための画像診断について、4人のエキスパートの先生方に御執筆をお願いした。腹部腫瘍の画像診断では超音波検査、CT、MRIを中心にして、各疾患の画像所見の特徴を、大阪府立母子総合医療センター放射線科の西川正則先生と国立小児病院放射線科の野坂俊介先生に、核医学診断では腹部腫瘍に用いられるシンチグラフィの適応とその限界を京都府立医科大学放射線科の奥山智緒先生に、放射線治療のための画像診断については放射線治療を行うのに必要な画像診断と治療効果判定について国立小児病院の正木英一先生に御執筆いただいた。

画像診断の方法は施設に応じてかなりばらつきがあるようである。非侵襲的で必要最小限の検査を行うことが重要であるが、検査法の適応とその限界について知っておき、適切な検査を選択する必要がある。しかし、放射線科医でも超音波検査、CT、MRIはよく知っているが、核医学や放射線治療は苦手と言う人もおり、主治医になる小児科や小児外科の先生方がこれらすべての適応や限界を知ることは容易ではない。そのような時に今回の特集を見て、日常診療に役立てていただければと思う。

特集 小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療

1. 小児腹部腫瘍の画像診断—肝・胆・膵・消化管

西川正則

大阪府立母子保健総合医療センター 放射線科

Imaging Diagnosis of Pediatric Abdominal Tumor —liver, gall bladder, pancreas, intestine—

Masanori Nishikawa

Department of Radiology, Osaka Medical Center and Research Institute for Maternal and Child Health

Abstract

The purpose of this paper is to provide an overview of the imaging diagnosis of the pediatric abdominal tumor, especially in liver, bile duct, pancreas, and GI tract.

Most abdominal tumor in children are first identified by palpation of a mass. Ultrasound, CT, and MRI are useful in evaluation of the origin, morphology, tissue characteristics and the extent of the masses. The frequency of the tumor, patient age, and the specific tumor marker are useful to limit the number of the differential diagnostic possibilities. The role of the imaging diagnosis is not only to differentiate the diagnosis of the tumors but also to evaluate the extension of the tumor.

Keywords : Abdominal mass, Children, Imaging diagnosis

はじめに

この稿では小児の腹部腫瘍のうち、肝臓、胆嚢、膵臓領域および消化管領域の腫瘍について、超音波検査(US)、CT、MRIを中心とした画像診断について、概論を述べる。

腫瘍性病変の画像診断は、通常まず原発臓器の目安がつけられ、各原発臓器別に頻度の高い順に、各腫瘍の特徴的な画像所見の合致を探していく作業が行われる。以下、各原発臓器別に画像診断・鑑別診断を述べる。

肝臓腫瘍の画像診断

1) 各肝臓腫瘍の特徴

肝臓原発腫瘍は約2/3が悪性で、通常はhepatoblastomaあるいはhepatocellular carcinomaである。fibrolamellar hepatocellular carcinomaや

undifferentiated (embryonal) sarcomaはまれである。

Hepatoblastomaは3歳以下、hepatocellular carcinomaは5歳以降に多い¹⁾。両者の画像での鑑別は困難である。

いずれも肝内に単発あるいは多発性に発生し、US上は不均一なエコー輝度を示す充実性腫瘍として認められる。CT上は単純では低濃度を呈し、造影剤投与後、動脈相では増強され、門脈・静脈相では不均一な低濃度の腫瘍として描出される(Fig.1)。線維性の偽被膜がhepatocellular carcinomaでみられることがある。石灰化はhepatoblastomaの40%に、hepatocellular carcinomaの5~10%に認められる。MRIではT1WIで不均一な低信号、T2WIで不均一な高信号を呈する。それぞれの画像で腫瘍内部の出血や壊死に相当する修飾がみられる。



Fig.1 Hepatoblastoma, a 1-year-old girl
Enhanced CT shows inhomogeneous mass in the right hepatic lobe.

腫瘍マーカーの α -fetoprotein は、hepatoblastoma の 60~70% で、hepatocellular carcinoma の 50% で上昇がみられる。

基礎疾患として、hepatoblastoma は Beckwith-Wiedemann syndrome, fetal alcohol syndrome, hemihypertrophy など、hepatocellular carcinoma は B 型肝炎をはじめとする慢性肝疾患 (type I 糖原病, シスチン症, 高チロシン血症, ウィルソン病, alpha-1-antitrypsin deficiency, 胆道閉鎖症, giant cell hepatitis) に合併することが知られている。

Fibrolamellar hepatocellular carcinoma は、通常 5 歳以降で、若年成人に多くみられ、診断時の平均年齢は 23~28 歳である。単純 CT では低濃度、MRI では T1WI で低信号、T2WI では高信号を示す比較的均一な腫瘍で、造影剤では種々の程度の増強効果を示す。中心部に線維性の central scar が 30~45% にみられ、同部に石灰化がよくみられる (40~55%)。Central scar は MRI では T1WI, T2WI とともに低信号にみえる。 α -fetoprotein は上昇せず、明らかな基礎疾患も知られていない。

Undifferentiated (embryonal) sarcoma は、境界明瞭な低濃度の腫瘍で内部に隔壁構造や、エンハンスされる充実部分などが認められる。

良性腫瘍は、肝臓腫瘍の約 1/3 を占め、mesenchymal origin と epithelial origin に大別され

る。mesenchymal origin では hemangioendothelioma, cavernous hemangioma, mesenchymal hamartoma が挙げられ、epithelial origin では、FNH (focal nodular hyperplasia), adenoma, cyst などが挙げられる。

これらのなかでは血管原性のものが最も多く認められる。

Hemangioendothelioma は生後 6 ヶ月以内にその 85% 以上が、うっ血性心不全や肝腫大、貧血、閉塞性黄疸、Kasabach-Merritt syndrome などで発見される。約半数に皮膚の血管腫を合併している。肝内に単発あるいは多発性にみられる。

US では種々のエコーパターンを呈し、血流増加のため腹腔動脈・肝動脈は拡張し、それ以下の大動脈の径は小さくなる。動静脈短絡が多いと肝静脈も拡張する。単純 CT では低濃度を呈し、約半数に石灰化を認める。造影剤投与後は辺縁から中心部に経時的に徐々に造影されるパターンが特徴的である (Fig.2)。小さい腫瘍は均一に造影されるが、大きい腫瘍では中心部には壊死部分や血栓化した部分が認められ、この部分は造影されない。MRI では、T1WI で低信号、T2WI で強い高信号を示し、内部の壊死、血栓化、石灰化などは種々の信号を示す。 ^{99m}Tc -HSA を用いたシンチグラムでは腫瘍部に持続的な集積を認め、診断に有用である。この腫瘍の自然経過は、最初は増大するが、1 歳~1 歳半頃のうちに退縮傾向を示すようになると言われている。

Cavernous hemangioma はより年長児にみられる。US では、境界明瞭な均一な高輝度を示すことが多く、変性や血栓化、線維化などに伴って不均一になったり、低輝度になったりする。また、内部の血流状態により経時的にそのエコー輝度が変わることも知られている。単純 CT では低濃度を示し、MRI では T1WI で低信号、T2WI では強い高信号を示す。造影剤投与後は辺縁の一部の結節状の濃染から中心部へと広がっていく造影パターンが特徴的とされる。

Mesenchymal hamartoma は隔壁を有する多房性腫瘍として見られることが多いが、囊胞部分が小さい場合は充実性腫瘍として認められ

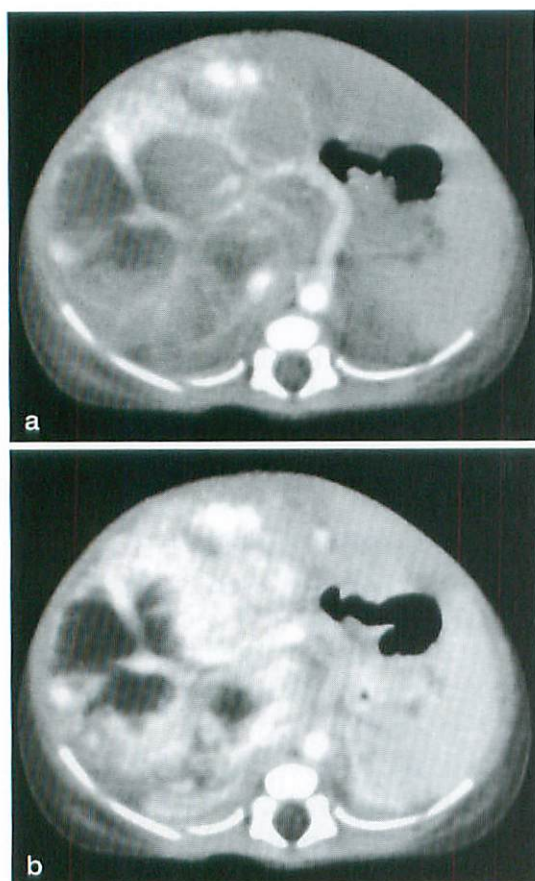


Fig.2 Hemangioendothelioma, a 1-day-old boy

- a: CT scan early after a bolus injection of contrast medium demonstrates intense peripheral enhancement.
b: Later CT image demonstrates the enhancement proceeding centrally.

る。血流増加や動静脈短絡のためうっ血性心不全を呈することもある。

FNHやadenomaは小児肝腫瘍のうち約2%を占め、まれな腫瘍である。

FNHでは典型的には中心部に線維性結合組織からなる星芒状の瘢痕がみられ、線維状の結合組織が周囲に向かって放射状にのびる。単純CTでは約半数で中心瘢痕部が低濃度領域として認められる。造影剤を投与した動脈相では中心瘢痕部に動脈をみることもある。MRIでは中心瘢痕部はT1WIで低信号、T2WIでは高信号にみられる。コロイド肝シンチでは腫瘍部に集積がみられた場合は診断的価値がある。

Adenomaはtype I 糖原病, Fanconi anemia, ガラクトース血症に合併することが知られており、梗塞、出血、破裂などで腹痛を来することがある。造影剤投与後では動脈相で造影され、門脈・静脈相では周囲肝と同程度前後の造影を示すなど、特徴的な所見に乏しい。

転移性腫瘍としては、Wilms tumor, neuroblastoma, rhabdomyosarcoma, lymphomaなどからの肝転移が多くみられる。

転移性腫瘍は多くの場合は肝内に多発性に腫瘍がみられるが、単発のこともある。USでは多くは低輝度を呈するが、高輝度のこともあり、時にbull's eye signと呼ばれるようなring状の構造がみられることもある。びまん性に転移性腫瘍が見られるとエコー上は不均一なエコーを示し、腫瘍としての診断が困難なこともある(Fig.3c)。単純CTでは低濃度、MRIのT1WIでは低信号、T2WIでは高信号を示し、中心部の変性壊死部はより高信号を呈することが多い。造影剤投与後は早期では辺縁が造影され後期では低濃度域として描出されることが多いが、より高濃度にみえたり、逆に周囲肝実質と同程度の濃度になり不明瞭化することもある。

2) 肝臓腫瘍の鑑別診断

以上、肝腫瘍の画像の特徴を述べたが、鑑別診断は実際には年齢と頻度から大きく絞られてくる。マーカーの上昇がみられた場合はさらに限られる。

生後まもない時期に巨大肝腫瘍をみた場合、hepatoblastoma, hemangioendothelioma, 転移性腫瘍(特にneuroblastoma VI-S)が鑑別に挙がる。hepatoblastoma, hemangioendotheliomaの鑑別は血管原性腫瘍の特徴(血管拡張、造影パターン、MRIでの強いT2延長、心不全などの症状)があるかどうかで鑑別される。転移性腫瘍は通常多発性であること、原発腫瘍の存在などから鑑別できる。Mesenchymal hamartomaで充実性成分が大きいときはhepatoblastomaとの鑑別が困難になる。

乳児期以降では、hepatoblastomaとhepatocellular carcinoma, hemangiomaなどがまず挙げられるが、hemangiomaは上記血管原性腫瘍の画像上の特徴がみられるかどうかで比較的容易

に除外できる。hepatoblastoma, hepatocellular carcinomaの両者の鑑別は画像上は困難で、年齢や基礎疾患などから推定される。

Central scar様の所見がみられた場合は、fibrolamellar hepatocellular carcinomaとFNHが挙がってくる。コロイド肝シンチが鑑別に役立つ。

Adenomaはまれだが、基礎疾患や出血などに基づく症状があった場合、鑑別診断に挙げられる。

胆道系腫瘍の画像診断

胆道系から発生した腫瘍性病変としては、choledochal cystが挙げられる。肝外胆管（総胆管）の拡張であり、肝内胆管との交通が証明

できれば診断は容易である。通常はUSで診断容易だが、客観的な観察と臍尿管合流異常の検索もかねてMRCPが有用である。

ほかに胆道系との交通を証明する手段としては、 ^{99m}Tc -HIDAによる胆道シンチ、DIC-CTなどもある。

右上腹部にみられる嚢胞性腫瘍の鑑別診断の中に挙げられ、mesenteric cyst, omental cyst, duplication cyst, pancreatic cystなどとの鑑別で問題となることがある。

Cholangiocarcinomaの発生が知られており、年齢が長じた例では内部の充実性腫瘍の有無に注意する必要もある (Fig.3)²⁾。



Fig.3 Cholangiocarcinoma arising in the choledochal cyst with hepatic metastases, a 14-year-old girl

a	b
c	d

a: Axial T2 weighted image shows multiple hepatic masses.

b: Axial T2 weighted image shows dilated common bile duct. Note the irregular inner surface of the wall.

c: Transverse sonogram demonstrates inhomogeneous liver parenchyma. Note no definite hepatic mass reveals, whereas MRI revealed multiple hepatic masses.

d: Transverse sonogram shows the tumor in the wall of dilated common bile duct.

膵臓腫瘍の画像診断

1) 各膵臓腫瘍の特徴

膵臓原発の腫瘍は大きくexocrine tumor, endocrine tumor, cystic tumorの3つに分けられる。

Exocrine tumorとしては, pancreatoblastoma, adenocarcinomaが挙げられる。

Pancreatoblastoma は平均6歳で発見されており, 膵臓のどの部分からも発生する。α-fetoproteinは25~55%で上昇し, 副腎皮質ホルモンを分泌しそれによる症状を呈することもある³⁾。辺縁はlobulateしたような形態を示し, 大きい場合は周囲の臓器へ進展し, 十二指腸や左副腎, 左腎, 脾臓などへの浸潤もみられる。内部には壊死や石灰化を伴い, リンパ節, 肝臓, 肺への転移が見られる。膵管の拡張はまれである。USでは不均一なエコー輝度を呈し, 単純CTでは低濃度, MRIではT1WIで低信号, T2WIで等高信号を示す。造影剤では軽度増強される。

Adenocarcinomaはductal origin, acinar cell originいずれもあるが, pancreatoblastomaとの鑑別は困難とされる。ductal adenocarcinomaは通常は小さく, 膵頭部に発生することが多く, 膵管の拡張を伴うことが多い。壊死や石灰化は少ないが大きくなると壊死を伴う。造影早期相では低濃度にみられる。acinar cell carcinomaは通常は大きく造影剤でよく増強され, 壊死部は低濃度を呈する。周囲組織に浸潤性に発育することもあり, 肝臓やリンパ節への転移もみられる。石灰化や肺への転移は少ない⁴⁾。

Endocrine tumorには, functioning tumorとして, insulinoma, gastrinoma, VIPoma, glucagonoma, somatostatinomaが挙げられる。通常, 前2者は小さく(2 cm以下), 後3者は大きい(5 cm以上)ことが多い。

Nonfunctioning tumorは発見時大きく(4 cm以上), 壊死や石灰化を伴っていることが多い。sizeが大きければ大きいほど転移や周囲への浸潤などの悪性所見がみられるようになる。

これらのislet cell tumorはいずれも造影剤投与後早期ではよく造影される。

嚢胞性腫瘍としてはcongenital cyst, lymph-angioma, cystadenoma(microcystic adenoma)が挙げられ, これらの画像上の鑑別は困難である。

Solid and cystic (solid and papillary epithelial) tumor of the pancreasは, 10歳代以降の若年女性に多くみられ, low gradeのmalignant tumorとして扱われる。膵尾部に多いが, どの部分からも発生する。画像的には嚢胞性腫瘍内に充実成分の混在した腫瘍として認められる。充実部分は造影剤で増強され, 嚢胞部分は種々の程度 of 出血や嚢胞変性を反映したものとなる。腫瘍内の出血成分はMRIで容易に認識できメトヘモグロビンが存在すれば, T1WIで高信号を呈する(Fig.4)。

そのほかには, 膵炎, 外傷後にpseudocystがみられることが多く, von Hippel-Lindau病では膵臓にcystが多発性にみられることがある。

2) 膵臓腫瘍の鑑別診断

膵臓に充実性の腫瘍をみた場合, pancreatoblastomaをはじめ, 上述の腫瘍が鑑別診断に挙がる。いずれも鑑別診断は困難だが, 特にpancreatoblastomaが大きく浸潤傾向を示した場合, neuroblastomaとの鑑別が難しい場合



Fig.4 Solid and papillary epithelial tumor of the pancreas, a 12-year-old boy

Coronal T1 weighted image shows the tumor with solid and cystic component in the pancreatic tail. The latter shows high intensity reflecting hemorrhage.

がある。ductal adenocarcinomaやacinar cell carcinomaとの鑑別は、これらには石灰化が少ないことや、ductal adenocarcinomaでは膵管拡張がみられることが多いのに対し、pancreatoblastomaでは腫瘍が大きい割に膵管拡張はほとんどみられないことなどが鑑別点になる。

膵尾部に出血を含んだ囊胞成分を伴う腫瘍をみた場合は、solid and cystic (solid and papillary epithelial) tumorの可能性が高い。特に女児であればその可能性はさらに高くなる。

消化管

1) 各消化管・腸間膜腫瘍の特徴

小児の消化管原発の充実性腫瘍のなかで最も多いのはmalignant lymphomaである。消化管の壁のびまん性あるいは限局性の肥厚像として認められる (Fig.5)。これはUS, CT, MRIのいずれでも認められる。USでは均一な非常に低輝度の壁肥厚像が認められ、CT, MRIでは造影剤による増強効果は乏しい。同時に他の部位のinvolvementとして、腸間膜や傍大動脈領域のリンパ節の腫大や実質臓器内の占拠病変あるいは臓器の腫大などが認められる (Fig.5)。腸間膜リンパ節の腫大では血管を挟むような特徴的な像(sandwich sign⁵⁾)がよく知られている。

他の充実性腫瘍としてはleiomyoma, hamartoma, hemangiomaなどが挙げられる。前2者は球形の均一な腫瘍として認められる。leiomyomaでは石灰化がみられることもある。hemangiomaは腸管壁の限局性あるいはびまん性の肥厚としてみられ、造影剤でよく造影される。leiomyosarcoma, adenocarcinomaは非常にまれである。

囊胞性腫瘍としては、duplication cystが挙げられる。壁の平滑な囊胞性腫瘍として認められる。USでは内面に粘膜に相当する一層の高輝度帯が認められることが特徴的とされる。異所性の胃粘膜あるいは脾組織を伴っていることがあり、これにより出血や炎症などを伴うとそれによる内部の液体の性状が変化し、US, CT, MRIではそれを反映した輝度や濃度、信号の変化がみとめられる。胃の囊胞性腫瘍としてはcystic teratomaも挙げられる。囊胞成分と石灰

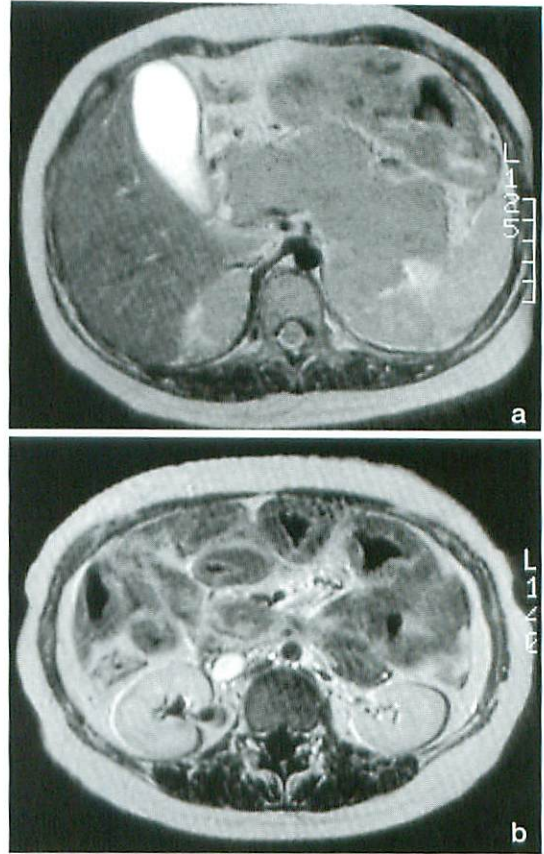


Fig.5 Malignant lymphoma, a 9-year-old boy
 a: Axial T2 weighted image demonstrates diffuse swelling of the pancreas and bilateral adrenal masses. Distinction from neuroblastoma or pancreatoblastoma is difficult.
 b: Contrast enhanced axial T1WI shows bowel wall thickening, suggesting malignant lymphoma because of its multi-organ involvement.

化、脂肪成分などが混在する。

腸間膜由来の囊胞性腫瘍としては、mesenteric cyst, omental cystが挙げられ、形態的に多房性囊胞性腫瘍として認められる。腫瘍内部の隔壁はUSで最もよく描出できる。出血や炎症を伴うとUS, CT, MRIではそれによる輝度や濃度、信号の変化が認められる。石灰化は認められることもあるが、まれである。

腸間膜由来の充実性腫瘍としては、lipoblastoma, inflammatory pseudotumor (inflammatory myofibroblastic tumor), rhabdomyosarcoma,

mesotheliomaなどが挙げられる。Lipoblastomaは線維性の隔壁を伴った脂肪組織の腫瘍で、脂肪組織と軟部組織の混在する不均一な濃度・信号を呈する腫瘍として認められる。他の腫瘍は不均一な軟部組織腫瘍としての画像を呈し、特異的な所見には乏しい。

2) 消化管・腸間膜腫瘍の鑑別診断

これらの腫瘍の鑑別診断で問題となるのは、原発臓器が特定できない場合に多い。

嚢胞性腫瘍では右上腹部でのcholedochal cystとの鑑別、骨盤腔内前方部では卵巣のcystやteratoma、膣や子宮の留水(血)腫、urachal cystなどとの鑑別、骨盤腔内後方すなわち仙骨前面ではsacroccygeal teratoma、anterior meningoceleなどとの鑑別が困難なことがある。充実性腫瘍ではneuroblastoma、PNET (primitive neuroectodermal tumor) や、骨盤腔内では膣、前立腺、膀胱、尿道などから発生したrhabdomyosarcomaなどとの鑑別が困難となることがある。

骨盤腔内の正常構造の確認、それらの圧排や偏位の状態などをみるにはMRIが適しており、腫瘍の石灰化の有無をみるにはCTが適している。消化管の状態をみるために消化管造影が必要なものもある。

Mesenteric cyst, omental cystでは、CT, MRIでは単房性にみえても、USでは内部の隔壁構造が描出できる場合があり、他の嚢胞性腫瘍との鑑別の際に有用である。これらに石灰化が見られた場合はteratomaとの鑑別が困難となったり、感染・炎症や出血を合併していると内部構造が変化し、鑑別診断が困難になることもある (Fig.6)。

おわりに

小児腹部腫瘍のうち、肝、胆、脾、消化管領域に関して、断層画像の特徴的所見、鑑別診断を中心に述べた。

一般に小児の腫瘍は大きくなった状態で発見され、原発臓器の同定が困難なことが多い。原発臓器が同定できれば、頻度的にまれなものは通常は考えないので、あとの鑑別診断は比較的限られてくることになる。比較的特異的なマーカーもあり、これらを参考にするとそれほど問

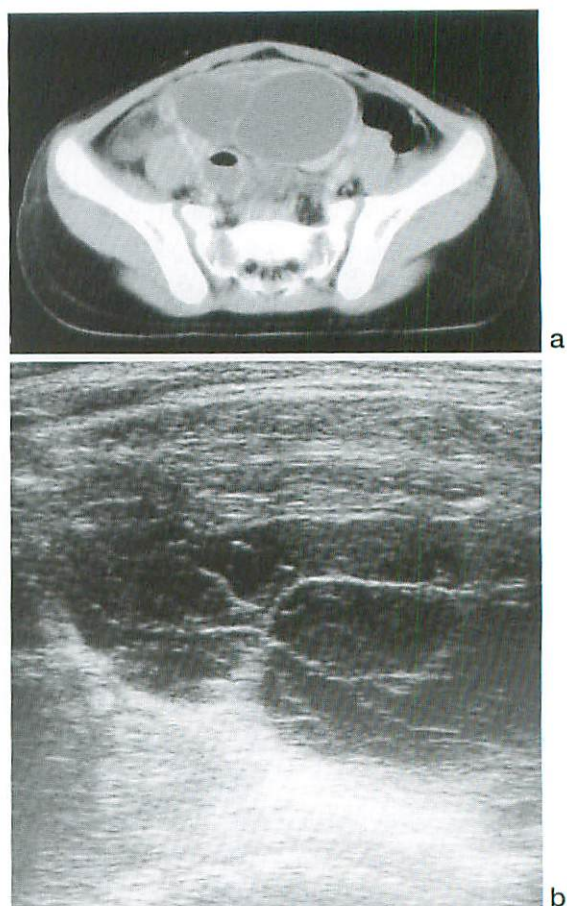


Fig.6 Complicated duplication cyst, a 5-year-old girl with abdominal pain and fever

- a: Contrast enhanced CT shows a cystic mass in the pelvic cavity. The wall of the mass is slightly enhanced. Ovarian mass, mesenteric/omental cyst, and duplication cyst are considered in the differential diagnosis.
- b: Transverse sonogram shows cystic mass with multiple septations. Duplication cyst usually is a sonolucent mass with/without inner echogenic layer and outer hypoechoic rim of muscle. When the cyst becomes infected or undergoes hemorrhage, the internal contents have echogenic debris or septations.

題となることは少ないように思う。

しかし、画像診断にはやはりおのずと限界があり、当然のことながら腫瘍の診断確定は病理診断によらざるをえない。画像診断には腫瘍の進展範囲の正確な評価も重要な役割であることを強調してこの項を終えたい。

●文献

- 1) Siegel MJ : Liver and Biliary Tract. Pediatric Sonography (2nd ed), Ed by Siegel MJ. New York, Raven Press, 1995, p171-236.
- 2) 戸谷拓二, 土岐 彰; 胆道拡張症における癌発生とその対策. 日外会誌 1996; 97: 594-598.
- 3) Roebuck DJ, Yuen MK, Wong YC, et al : Imaging features of pancreatoblastoma. Pediatr Radiol 2001; 31: 501-506.
- 4) Montemarano H, Lonergan GJ, Bulas DI, et al : Pancreatoblastoma : imaging findings in 10 patients and review of the literature. Radiol 2000; 214: 476-482.
- 5) Mueller PR, Ferrucci JT, et al : Appearance of lymphomatous involvement of mesentery by ultrasonography and body computed tomography : The "Sandwich sign". Radiol 1981; 34: 467-473.
- 6) Siegel MJ : Liver and Biliary Tract. Pediatric Body CT. Philadelphia, Lippincott Williams & Wilkins, 1999, p141-174.
- 7) Siegel MJ : Spleen, Peritoneum, and Abdominal Wall. Pediatric Body CT. Philadelphia, Lippincott Williams & Wilkins, 1999, p175-200.
- 8) Siegel MJ : Gastrointestinal Tract. Pediatric Body CT. Philadelphia, Lippincott Williams & Wilkins, 1999, p201-225.
- 9) 井上 豊, 村上卓道: 肝. 画像診断学, 中村仁信編. 東京, 南山堂, 2001, p509-555.
- 10) 細見尚弘, 黒田知純, 村上卓道: 脾. 画像診断学, 中村仁信編. 東京, 南山堂, 2001, p556-580.

特集 小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療

2. 小児放射線治療のための画像診断

正木英一

国立小児病院 放射線科

Diagnostic Imaging for Pediatric Radiation Oncology

Hidekazu Masaki

Department of Radiology, National Children's Hospital

Abstract

The therapeutic policy for pediatric cancer is a concept of “total cell kill”, and radiotherapy developed with combined modality therapy such as systemic chemotherapy and surgery.

Diagnostic radiologists must realize the treatment principles for pediatric cancer and the staging system.

Some cases of pediatric cancer (Wilms tumor, neuroblastoma and rhabdomyosarcoma) are described.

Keywords: Wilms tumor, Neuroblastoma, Rhabdomyosarcoma

はじめに

小児悪性腫瘍の治療方針はtotal cell killの概念であり、化学療法の全身療法と、手術療法・放射線療法の局所療法をうまく組み合わせた集学的治療が功を奏している。放射線治療のために必要とされている画像診断は、その集学的治療の中で放射線治療がどのように扱われているかを理解し、その腫瘍のstaging systemを理解しなければならない。即ち、初発時の腫瘍範囲が術後照射野として必要になるのか、術前化学療法により縮小した腫瘍範囲を照射野として設定するのか等の放射線腫瘍医が要求する情報を提供しなければならない。

ここに小児腫瘍として代表的なウィルムス腫瘍、神経芽腫、横紋筋肉腫を提示する。

ウィルムス腫瘍

ウィルムス腫瘍は年間約50例が小児がん全国

登録に報告されている。この腫瘍はNational Wilms Tumor Study (NWTs) のrandomized trialにより、現在では治癒するものとなった。stagingは日本ではNWTs病期分類 (Table 1) に準じた日本小児外科学会分類が用いられている。化学療法の強化とともに、放射線治療線量は軽減化し、ほとんど放射線の合併症を問題にしないで済むようになった (Table 2)^{1,2)}。

症例 1. ウィルムス腫瘍, 3歳女児, stage III

腹部腫瘍で来院し、CTスキャン、血管造影にてウィルムス腫瘍と診断され、一期的手術が施行された。現在の腫瘍診断には血管造影は行われないが、この腫瘍のようにCTスキャンのみでは肝腫瘍、副腎腫瘍、腎腫瘍の鑑別が難しい場合には血管造影が適応となる。この腫瘍は右腎動脈から栄養される腫瘍であることが明らかとなっている (Fig.1a)。通常下大静脈造影は行われないが、この腎腫瘍は右腎静脈から下大静脈に腫瘍栓塞が一部突出しているのが分か

Table 1 National Wilms Tumor Study (NWTs) Staging System**Stage I (43% of patients)**

The tumor is limited to the kidney and was completely excised. The renal capsule has an intact outer surface. The tumor was not ruptured or biopsied prior to removal. The vessels of the renal sinus are not involved. There is no evidence of tumor at or beyond the margins of exsection.

Stage II (23% of patients)

The tumor extends beyond the kidney, but was completely resected. There is regional extension of tumor (i.e., penetration of the renal capsule, or extensive invasion of the renal sinus). The blood vessels outside the renal parenchyma, including those of the renal sinus, contain tumor. The tumor was biopsied (except for fine needle aspiration), or there was spillage of tumor before or during surgery that is confined to the flank, and does not involved the peritoneal surface. There is no evidence of tumor at or beyond the margins of resection.

Stage III (23% of patients)

Residual non-hematogenous is present, and confined to the abdomen. Any one of the following may occur :

1. Lymph nodes within the abdomen or pelvis are found to be involved by tumor. (renal hilus, para-aortic chains or beyond). (Lymph node involvement in the thorax, or other extra-abdominal sites would be a criterion for stage IV).
2. The tumor penetrated through the peritoneal surface.
3. Tumor implants are found on the peritoneal surface.
4. Gross or microscopic tumor remains post-operatively (e.g., tumor cells are found at the margin of surgical resection on microscopic examination).
5. The tumor is not completely resectable because of local infiltration into vital structures.
6. Tumor spill not confined to the flank occurred either before or during surgery.

Stage IV (10% of patients)

Hematogenous metastases (lung, liver, bone, brain, etc.), or lymph node metastases outside the abdomino-pelvic region are present.

Stage V (5% of patients)

Bilateral renal involvement is present at diagnosis.

Table 2 National Wilms Tumor Study - 5 protocol

stage I /favorable	—————	surgery	—	no RT	—————	no CT
						less than 24 months, tumor weighing less than 550g.
stage I /favorable	—————	surgery	—	no RT	—————	EE-4A AMD+VCR (18 weeks)
						more than 24 months, tumor weighing more than 550g.
I /anaplasia (focal of diffuse)	—					
stage II /favorable	—————	surgery	—	no RT	—————	EE-4A AMD+VCR (18 weeks)
stage III /favorable	—————	surgery	—	1080cGy	—————	DD-4A AMD+VCR+ADR (24 weeks)
stage II - III /anaplasia (focal)	—					
stage IV /favorable	—————	surgery	—	1080cGy	—————	DD-4A AMD+VCR+ADR (24 weeks)
stage IV /anaplasia (focal)	—					
stage I - III /CCSK	—————	surgery	—	1080cGy	—————	I AMD+VCR+CPM+VP-16 (24 weeks)
stage II - IV /anaplasia (diffuse)	—	surgery	—	1080cGy	—————	I AMD+VCR+CPM+VP-16 (24 weeks)
stage I - IV /rhabdoid tumor	—————	surgery	—	1080cGy	—————	RTK CBDCA+VP-16+CPM (24 weeks)

AMD=dactinomycine (actinomycin D), beginning within 5 days post-nephrectomy (during week 0)

VCR=vincristine, beginning within 7 days post-nephrectomy (during week 1) VP-16=etoposide

ADR=doxorubicin (Adriamycin) CPM=cyclophosphamide CBDCA=carboplatin

Postoperative Radiotherapy : Treatment is started not later than day 9 (the day of surgery is day 0) and given in daily 180 cGy doses five days a week.

り、手術時の腎静脈結紮に際して有用な情報となった (Fig.1b). この時のCT (11秒/1スライス) では、腫瘍塞栓は不明であったが、最近のマルチスライスやMRIでは検出可能と思われる。右腎臓下極を圧排する巨大な腫瘍が肝臓をも圧排し、腎臓のピークサインが認められている。

下大静脈を前方に偏位させ、大動脈との間にリンパ節腫大 (n1) を認めている (Fig.1c). 放射線治療において axial view としてのCTスキャン像やMRI像のみでは照射野設定が困難であり、スカウト・ビューにスライス位置情報を画像として残してもらう必要がある。

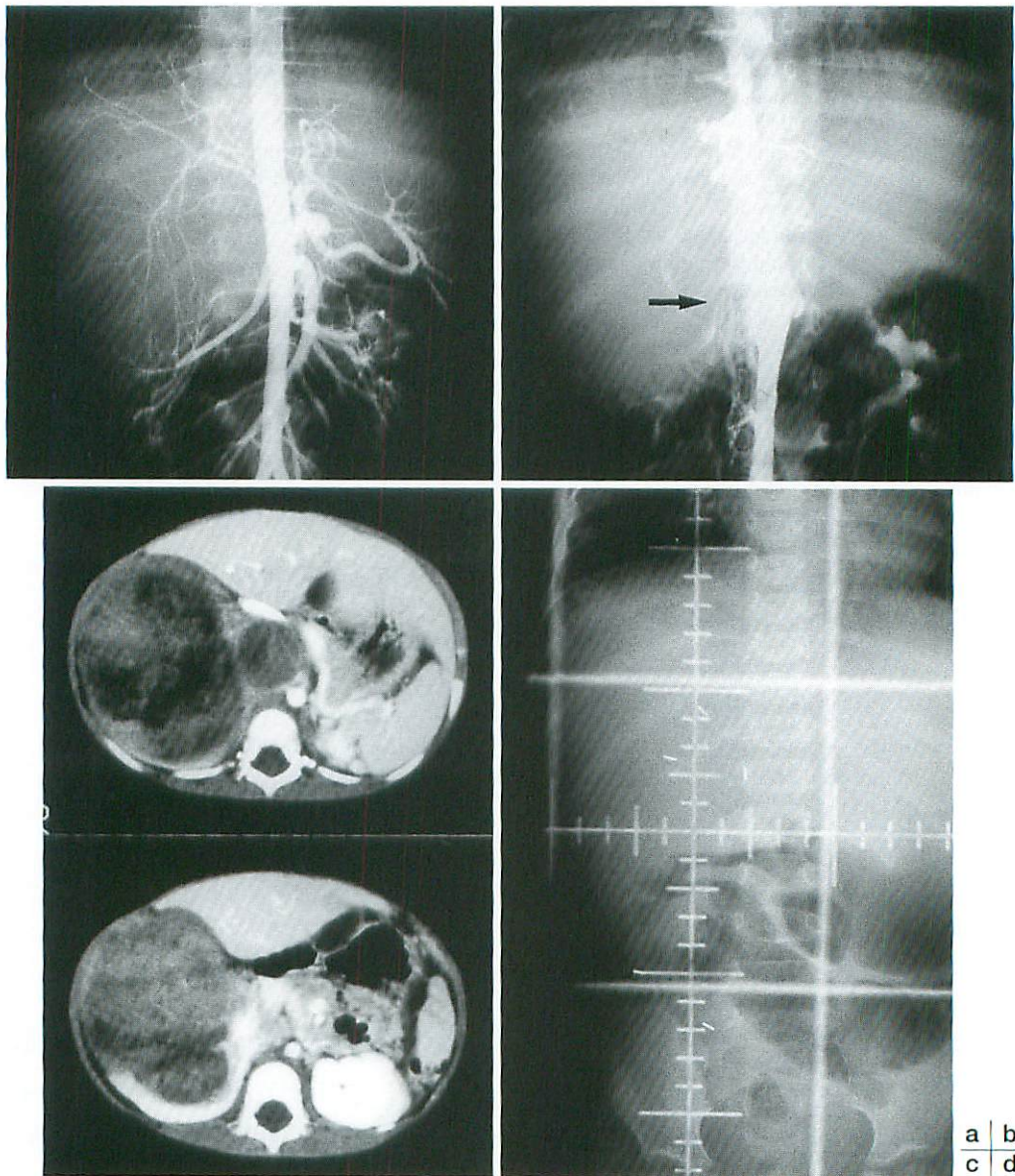


Fig.1 Wilms tumor, a 3-year-old girl, stage III

- a : Aortography revealed tumor fed by the right renal artery.
- b : IVC-graphy revealed tumor emboli in the right renal vein (arrow).
- c : Enhanced CT scan (at admission) showed beak sign of the kidney.
- d : Simulation film for postoperative radiotherapy.

ウィルムス腫瘍は厚い腎皮膜に覆われているため、皮膜破綻なく全摘可能な腫瘍とされている。この際の放射線治療は術後照射となり、NWTSプロトコールに準じて行われる。術後照射野は術前の腫瘍床、リンパ節転移範囲を十分に含み、患側のみならず対側を含む全椎体を照射野に入れることが必要である。しかし、腎皮膜を破綻することなく全摘できた腫瘍に対しては、NWTSで言われているような側腹壁を照射野に入れる必要はない (Fig.1d)。

症例 2. ウィルムス腫瘍, 2歳4ヵ月男児, stage IV

巨大腹部腫瘍にて近医入院。精査にて多発肺転移を伴う後腹膜腫瘍と診断され当院転院。胸部単純写真にて両肺多発転移を認め (Fig.2a), MRI, CTスキャンにて上腹部から骨盤腔まで占める巨大な後腹膜腫瘍を認め (Fig.2c, d), その腫瘍により急性右尿管閉塞を来しているため (Fig.2b), 腎外瘻術を行った。開腹生検にて腎外ウィルムス腫瘍と診断され、NWTS-5に従って術前化学療法を開始した。9週後腫瘍が縮小し (Fig.2e, f), 根治術可能と判断され、手術施行するも腹膜播種が認められた。術後化学療法は術後6日目から開始し、術後放射線療法は腹膜播種であるため術後9日目から全腹照射を開始し (Fig.2g), 術後52日目からは全肺照射を開始した (Fig.2h)。ウィルムス腫瘍の肺転移への全肺照射は単純写真で転移が認められた時に適応とされ、CTスキャンのみで認められるような転移には照射の適応がないとされている。

神経芽腫

神経芽腫は小児固形腫瘍の中で最も発生頻度の高い腫瘍で年間150~200例発生するとされてきたが、6ヵ月乳児検診時の尿中vanillylmandelic acid (VMA), homovanillic acid (HVA) 定量によるマスキングにてその発見頻度も高まってきた。早期診断がマスキングにて可能となり、1歳以下のマスキング症例では殆ど治癒するようになったが、進行症例の治療成績は相変わらず悪い。病期分類はEVANS分類に準じた日本小児外科学会分類を日本では用いているが、最近International

Neuroblastoma Staging System (INSS) が国際的に認知された (Table 3)。stage I と、stage II でリンパ節転移がなく全摘されたものには術後放射線療法は必要ないが、予後不良因子であるN-myc増幅遺伝子の増幅が認められたり、リンパ節転移のあるstage II以上の進行期には術後放射線療法が必要で、症例により術中照射、全身照射などが適応となる (Table 4)^{2,3,4)}。

神経芽腫の発生起源は、胎生期の神経堤 (neural crest) 細胞から形成された神経節である。交感神経節は脊髄の両側に連鎖を形成した交感神経幹となり、その一部が副腎髄質を形成する。これらから神経芽腫が発生するため、マスキング陽性とされた患児の原発巣検索には全身検索が必要となる。小児の腫瘍検索手段のfirst choiceとされている超音波検査に次いで、I-123 metaiodo-benzylguanidine (MIBG) シンチグラフィが神経芽腫検索の特異的診断となる^{5,6)}。

症例 3. 神経芽腫, 3歳男児, stage III

腹痛のため近医入院し、CTスキャンにて後腹膜腫瘍と診断され、当院入院となった。CTスキャンにて石灰化を伴う左副腎腫瘍で巨大な一塊となった大動脈リンパ節転移を認める (Fig.3a)。VMA陰性、HVA高値であり、神経芽腫stage IIIと診断し、開腹生検を行った。N-myc 70 copies, 嶋田分類Unfavorable histologyとされ厚生省班プロトコールによる化学療法4回施行したところ腫瘍縮小効果を認め (Fig.3b), 4ヵ月後に全摘術施行された。術後12日目から術後化学療法を開始し、33日目から術後放射線療法が始められた。

この症例のように化学療法で腫瘍縮小をはかり根治術を行うことは、delayed primary surgeryとして小児がんでは多くの腫瘍に適応されていることであり、このことにより治療成績が向上してきた経緯がある。放射線治療としても、この化学療法の進歩により照射線量を軽減できるようになってきている。

しかし、術後照射野の設定には、初発時のリンパ節転移巣を含む腫瘍巣を全てカバーすることが必要であり、腫瘍縮小がはかれたからといって照射野縮小は考えられない。但し、なるべく

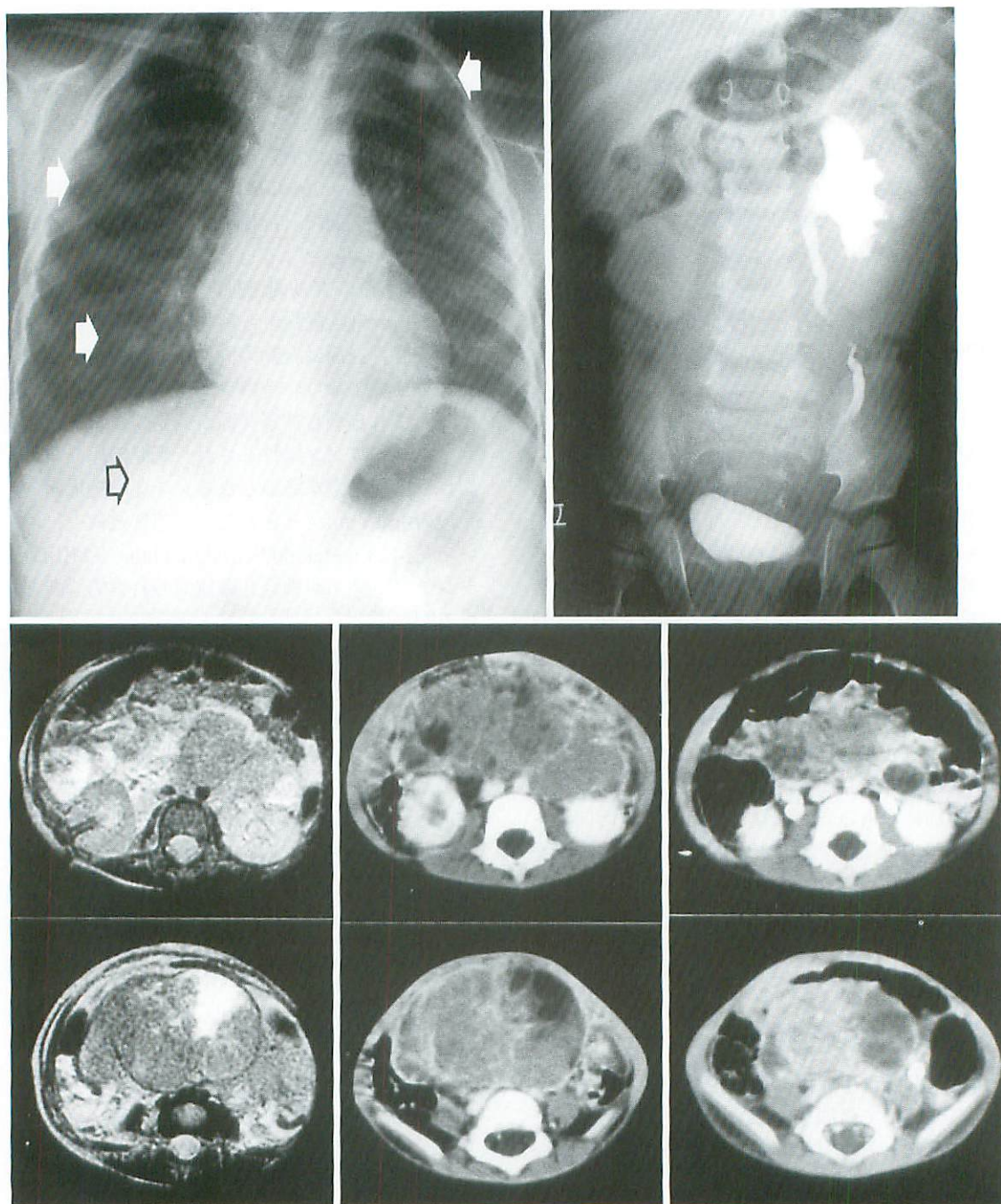


Fig.2 Wilms tumor, a 2-year and 4-month-old boy, stage IV

a : Chest X-ray revealed coin lesions (arrows).

b : EU showed acute urinary tract obstruction and coin lesion in the right lung base.

c : MRI showed huge high and low intensity mass on T2WI.

d : Enhanced CT scan showed huge abdominal mass (at admission).

e : After 4 weeks chemotherapy, CT scan revealed the tumor decreased in size.

a	b
c	d e

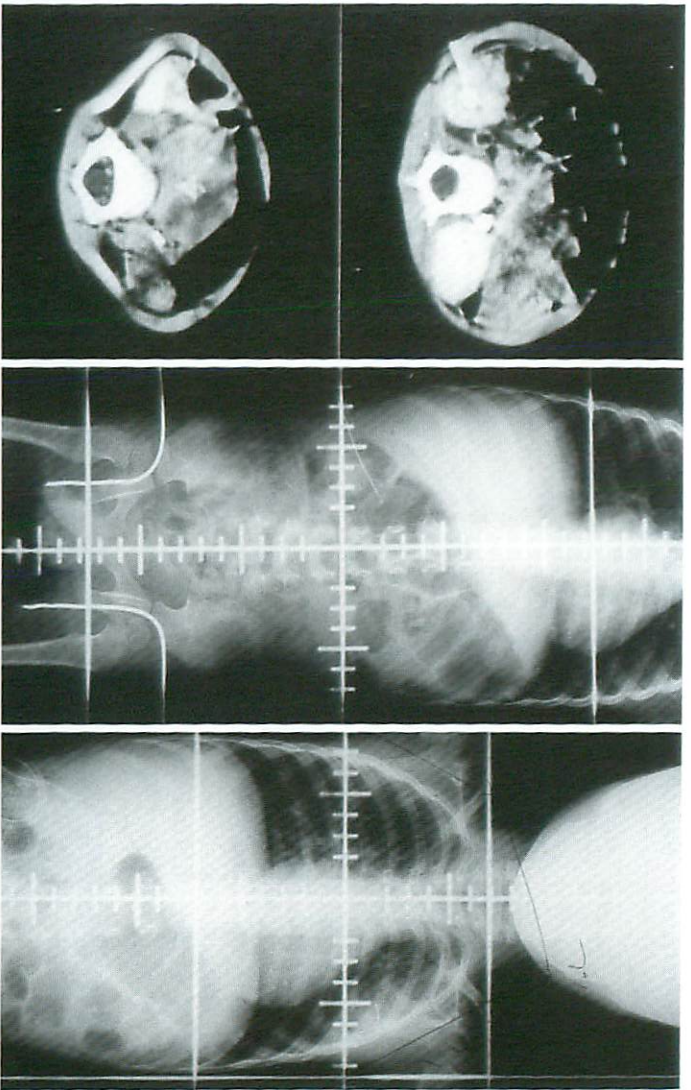


Fig.2

f : After 9 weeks' chemotherapy, CT scan revealed the tumor more decreased in size and these images indicated radical-operability.

g : Whole abdominal simulation film (started at day 9 (1050cGy/13 fx/10 days)).

h : Whole lung simulation film (started at day 52 (1200cGy/16 fx/17days)).

f | g | h

Table 3 International Neuroblastoma Staging System (INSS)

Stage 1 : localized tumor with complete gross excision, with or without microscopic residual disease ; representative ipsilateral lymph nodes negative for tumor microscopically (nodes attached to and removed with the primary tumor may be positive).

Stage 2A : localized tumor with incomplete gross excision ; representative ipsilateral nonadherent lymph nodes negative for tumor microscopically.

Stage 2B : localized tumor with incomplete gross excision ; representative ipsilateral nonadherent lymph nodes negative for tumor microscopically.

Stage 3 : unresectable unilateral tumor infiltrating across the midline, with or without regional lymph node involvement ; or localized unilateral tumor with contralateral regional lymph node involvement ; or midline tumor with bilateral extension by infiltration (unresectable) or by lymph node involvement. The midline is defined as the vertebral column. Tumors originating on one side and crossing the midline must infiltrate to or beyond the opposite side of the vertebral column.

Stage 4 : any primary tumor with dissemination to distant lymph nodes, bone, bone marrow, liver, skin, and/or other organs (except as defined for stage 4S).

Stage 4S : localized primary tumor (as defined for stage 1, 2A, or 2B), with dissemination limited to skin, liver, and/or bone marrow (limited to infants less than 1 year of age). Marrow involvement should be minimal (i.e., <10% of total nucleated cells identified as malignant by bone biopsy or by bone marrow aspirate). More extensive bone marrow involvement would be considered to be stage 4 disease. The results of the meta-iodobenzylguanidine (MIBG) scan (if performed) should be negative for disease in the bone marrow.

Table 4 Protocol for Neuroblastoma in National Children's Hospital

stage I	S (CR)	no RT	no CT or mild CT
stage II	S (CR)	no RT	mild CT
	S (no CR or unfavorable type)	RT	mild CT
stage III	S	RT*	intensive CT +/- ABMT
	intensive CT — S (delayed primary)		
stage IV-A	intensive CT — S (delayed primary)	RT*	intensive CT +/- ABMT
stage IV-B			
stage IV-S	(CT or RT**) — S	no RT	no CT or mild CT

S=surgery

CR=complete resection

CT=chemotherapy

mild : JAMES method (vincristin 1.5mg/m², cyclophosphamide 300mg/m² on alternate weeks)

intensive : multiagent chemotherapy-doxorubicine, DTIC, cisplatinum, etc.

RT=radiotherapy

RT* : intraoperative radiotherapy for elder children

CT or RT** : emergency therapy to avoid liver rupture or impediment of circulation



Fig.3 Neuroblastoma, a 3-year-old boy, stage III (N-myc : 70 copies)

a : Enhanced CT scan revealed huge calcified left adrenal mass with paraaortic lymphnode metastases.

b : After 4 cycle chemotherapy, CT scan revealed the tumor decreased in size and these images indicated radical-operability.

c : Simulation film for postoperative radiotherapy.

正常組織を照射野に入れないよう鉛ブロックで遮蔽することは必要である (Fig.3c).

症例 4. 神経芽腫, 11ヵ月女児, stageⅣA

両側頭骨腫脹にて来院. CTスキャンにて左腎上極に 3 cm 大の腫瘍を認め, 両側頭骨に骨破壊像を認め, 骨転移を伴う神経芽腫と診断された (Fig.4a, b). またI-123 MIBGシンチグラフィにて原発巣および全身骨格に集積を認めた (Fig.4c). 左側頭骨生検施行し, Neuroblastoma, 嶋田分

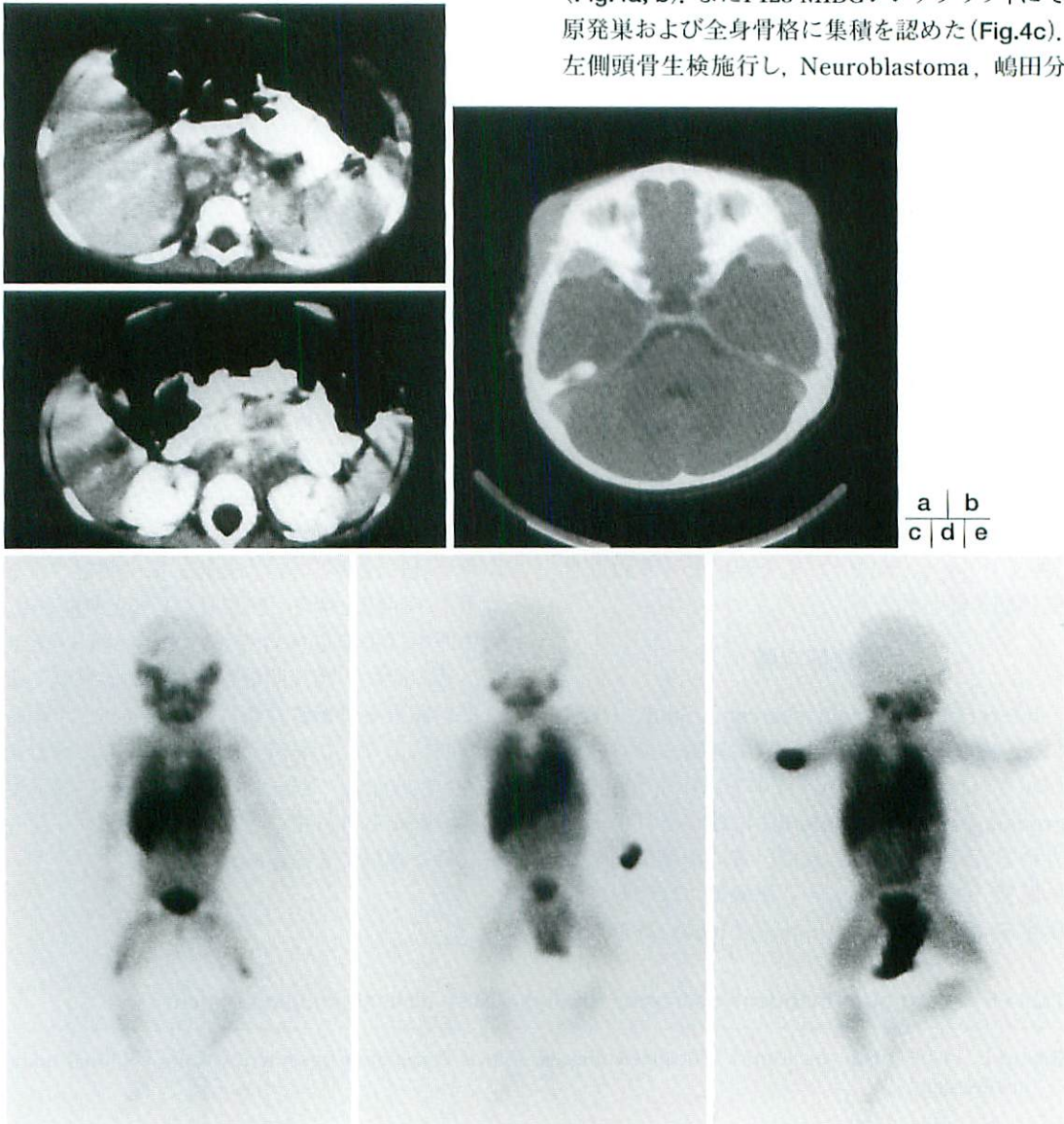


Fig.4 Neuroblastoma, an 11-month-old girl, stageⅣA

- a : Enhanced CT scan revealed left adrenal mass with calcification and paraaortic lymphnode metastases.
- b : Head CT scan showed bilateral temporal bone metastases.
- c : I-123 MIBG scintigram (at admission) showed positive findings at multiple skeletal regions and primary lesion. Bilateral temporal lesions were bone metastases, but other lesions were bone marrow metastases.
- d : After 3 cycle chemotherapy, I-123 MIBG scintigram showed positive finding at right temporal lesion and other lesions were negative.
- e : After 5 cycle chemotherapy and temporal irradiation, all skeletal findings had disappeared.

類Unfavorable histology, N-myc 120 copiesと病理診断された。この側頭骨以外の全身骨格系へのI-123 MIBG集積は骨髄転移と考えられている。化学療法 (CDDP, VP-16, THP-ADR, CPM 6 cycle) と両側頭骨放射線治療 (1920cGy/10fx/15 days) によりI-123 MIBGシンチグラムが陰性化した (Fig.4d, e)。この神経芽腫に特異的な核医学診断法であるI-123 MIBGシンチグラフィは治療効果判定に用いられており、この結果により骨・骨髄転移巣がcomplete remissionと診断されたので、原発巣のdelayed primary surgeryと術中照射 (6 MeV 電子線1200cGy) が行われた。術中照射の照射野は術後照射野と同じ考えで、初発時のCT所見を参考に左副腎腫瘍巣とリンパ節転移巣を十分に含む照射野とし、大きめの矩形アクリル・ツープスを挿入し術者と放射線治療医がその確認をする。術後化学療法 (CDDP, VP-16, THP-ADR, CPM 4 cycle) は術直後から開始でき、TBI (1200cGy/6fx/4 days (A & P ports, b.i.d.)) を全処置とする自家骨髄移植が行われた。

横紋筋肉腫

Intergroup Rhabdomyosarcoma Study (IRS) により手術後の化学療法と放射線療法の有効性が示された。病期分類は日本ではIRSのclinical grouping system (Table 5) に準じた日本小児外科学会分類が用いられている。組織分類では胎児型 (embryonal type)、組織型では胎児型に属するぶどう肉腫型 (botryoid type) は予後良

好であり、胞巣型 (alveolar type) は予後不良である。治療はIRS-5に準じた治療プロトコルが本邦で現在検討されている^{2,7,8)}。

症例 5. 横紋筋肉腫 (後腹膜原発)、6 歳女児、stage III

腹部腫瘍にて近医入院。悪性腫瘍疑いにて当院転院し、CTスキャンにて造影効果のある仙骨前部後腹膜原発腫瘍 (Fig.5e)、MRI T2WIにてhigh intensityの腫瘍であった (Fig.5d)。Ga-67-citrateシンチグラフィにて原発巣のみ陽性所見が認められ、遠隔転移は認められなかった (Fig.5a)。開腹生検にて横紋筋肉腫胎児型と診断され、一期的根治術は不可能とされたためIRS-44プロトコルにて化学療法が開始された。Ga-67-citrateシンチグラフィにて化学療法の効果を確認し (Fig.5b, c)、5クール終了時のCTスキャン (Fig.5f) にて根治術可能と判断され、delayed primary surgeryが施行された。同時に術中照射を計画していたが、手術時に腫瘍が椎管孔に浸潤していたため、術中照射のみでは根治不可能と考え、外照射が必要と判断され、術中照射は小線量 (6MeV 電子線1000cGy) とした。その際に、術後照射野から卵巣が外れるように左卵巣を骨盤腔左側に偏位させた。手術時の判断により、初発時の腫瘍巣を十分に含む術後照射3960cGy (b.i.d.) を施行したが、左卵巣は照射野から外れていることがシミュレーション写真で確認できる (Fig.5g)。

Table 5 Intergroup Rhabdomyosarcoma Studies (IRS) clinical grouping system

Group I (13% of all patients) : localized disease that is completely resected with no regional nodal involvement.
Group II (20% of all patients)
Group II A : grossly resected tumor with microscopic residual disease, but no regional nodal involvement.
Group II B : regional disease with involved nodes, with complete resection and no residual disease.
Group II C : regional disease with involved nodes, grossly resected, but with evidence of microscopic residual and/or histologic involvement of the most distal regional node (from the primary site). Approximately are in this group.
Group III (48% of all patients) : incomplete resection (or biopsy only) of the primary site and therefore has gross residual disease.
Group IV (18% of all patients) : distant metastatic disease present at the time of diagnosis.

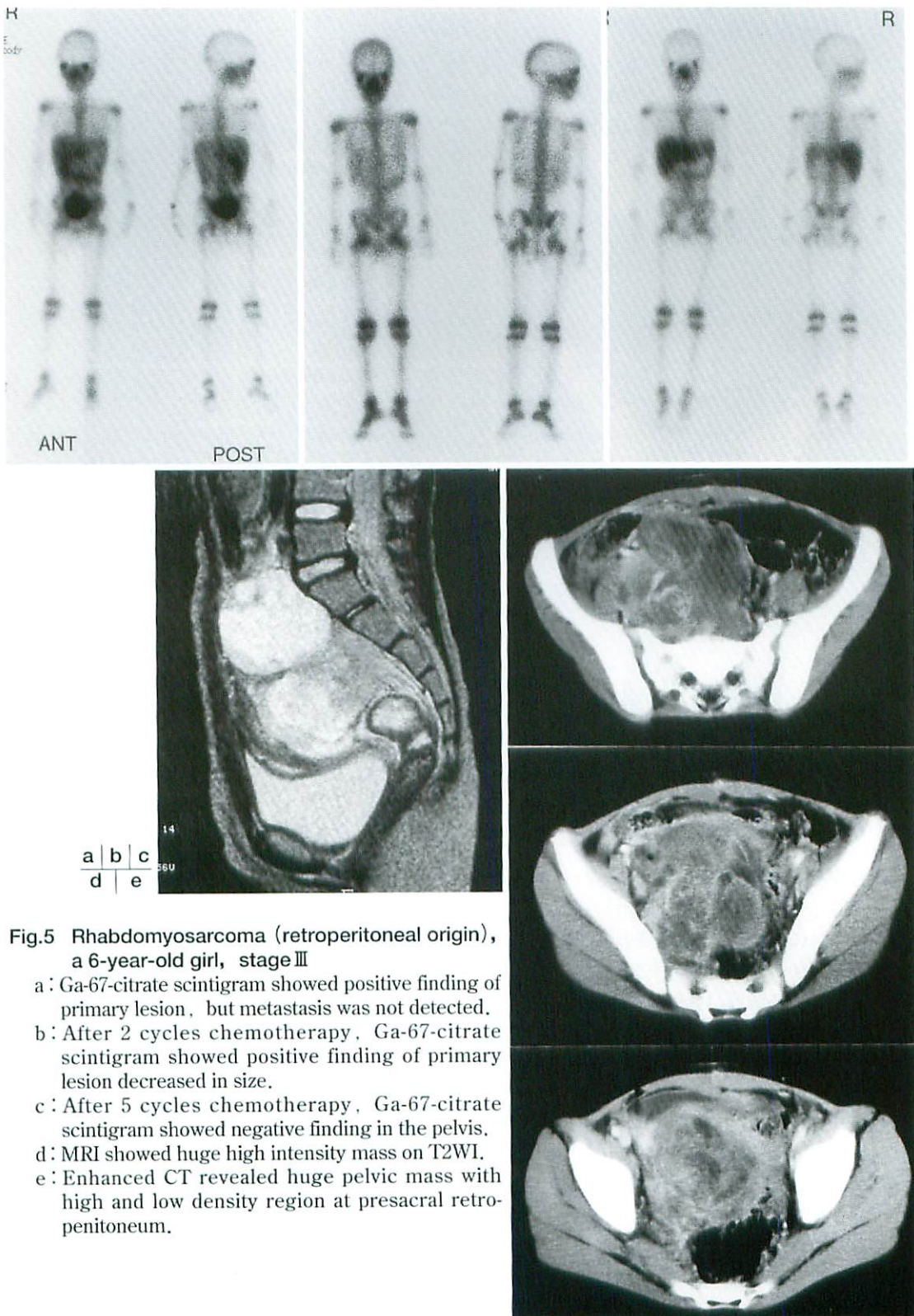
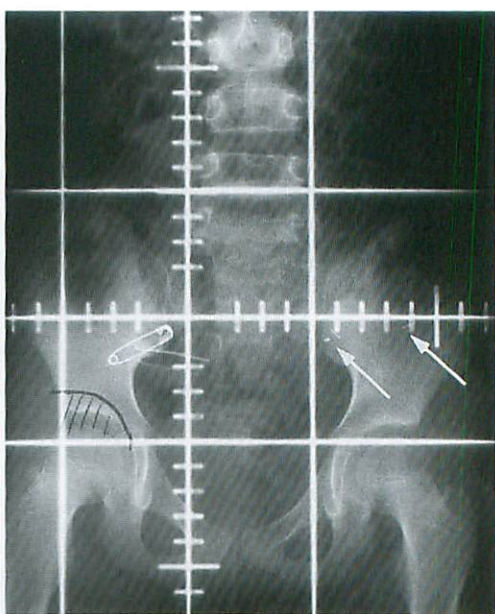
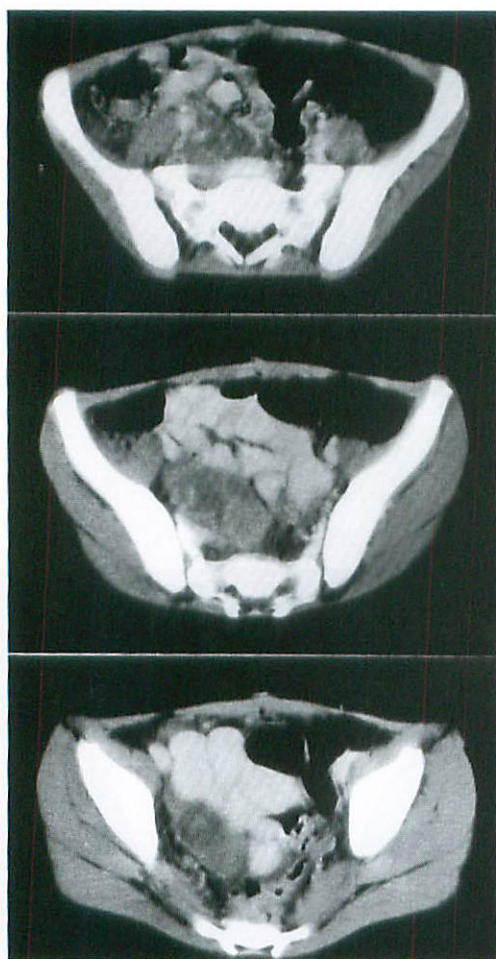


Fig.5 Rhabdomyosarcoma (retroperitoneal origin), a 6-year-old girl, stage III

- a : Ga-67-citrate scintigram showed positive finding of primary lesion, but metastasis was not detected.
- b : After 2 cycles chemotherapy, Ga-67-citrate scintigram showed positive finding of primary lesion decreased in size.
- c : After 5 cycles chemotherapy, Ga-67-citrate scintigram showed negative finding in the pelvis.
- d : MRI showed huge high intensity mass on T2WI.
- e : Enhanced CT revealed huge pelvic mass with high and low density region at presacral retroperitoneum.



f | g

Fig.5

- f: After 5 cycles chemotherapy, CT scan revealed the tumor decreased in size and these images indicated radical-operability.
- g: Simulation film for postoperative radiotherapy revealed markers of the left ovary which was re-located outside the radiation field (arrows).

治療効果判定

悪性腫瘍の治療効果判定にGa-67-citrateシンチグラフィを用いることは少ない。これは化学療法によりGa-67集積が影響されるためであり、通常はTl-201-chlorideシンチグラフィが有用とされている。脳腫瘍の放射線治療後脳壊死か腫瘍再発かの鑑別⁹⁾、横紋筋肉腫の治療による腫瘍のviabilityの診断にもTl-201-chlorideシンチグラフィが用いられている^{6,10)}。

神経芽腫ではI-123 MIBGシンチグラフィが治療効果判定と経過観察に用いられている⁶⁾。

症例 6. 横紋筋肉腫 (副鼻腔原発), 5歳3ヵ月男児, stage III

鼻閉・呼吸困難にて近医入院。CTスキャン (Fig.6a), MRI (Fig.6b) にて頭蓋底を破壊しトルコ鞍まで達する上咽頭・副鼻腔腫瘍を認め、当

院転院となる。両視神経圧迫症状が急速に認められ、左眼の視力が光覚のみ分かる程度となり、両眼失明の恐れのため緊急照射となる (Fig.6g)。照射と同時期に生検を施行し横紋筋肉腫胎児型と診断された。照射による腫瘍縮小効果が認められ、照射野縮小を数度にわたり行った。照射開始2週後には左視力が回復したので、化学療法と放射線療法の併用療法を続行することとなった。照射終了後もMRIにて造影効果のある腫瘍の残存を認めたため (Fig.6c)、腫瘍のviabilityを見るためにTl-201-chlorideシンチグラフィを行い、初診時Ga-67-citrate SPECTにて陽性所見が認められた鼻咽頭には (Fig.6e)、Tl-201-chloride SPECTにて陰性所見を得たのでviabilityのないものとして化学療法のみ続行した (Fig.6f)。その後の経過観察にて腫瘍は縮小し、瘢痕組織を認めるのみとなった (Fig.6d)。

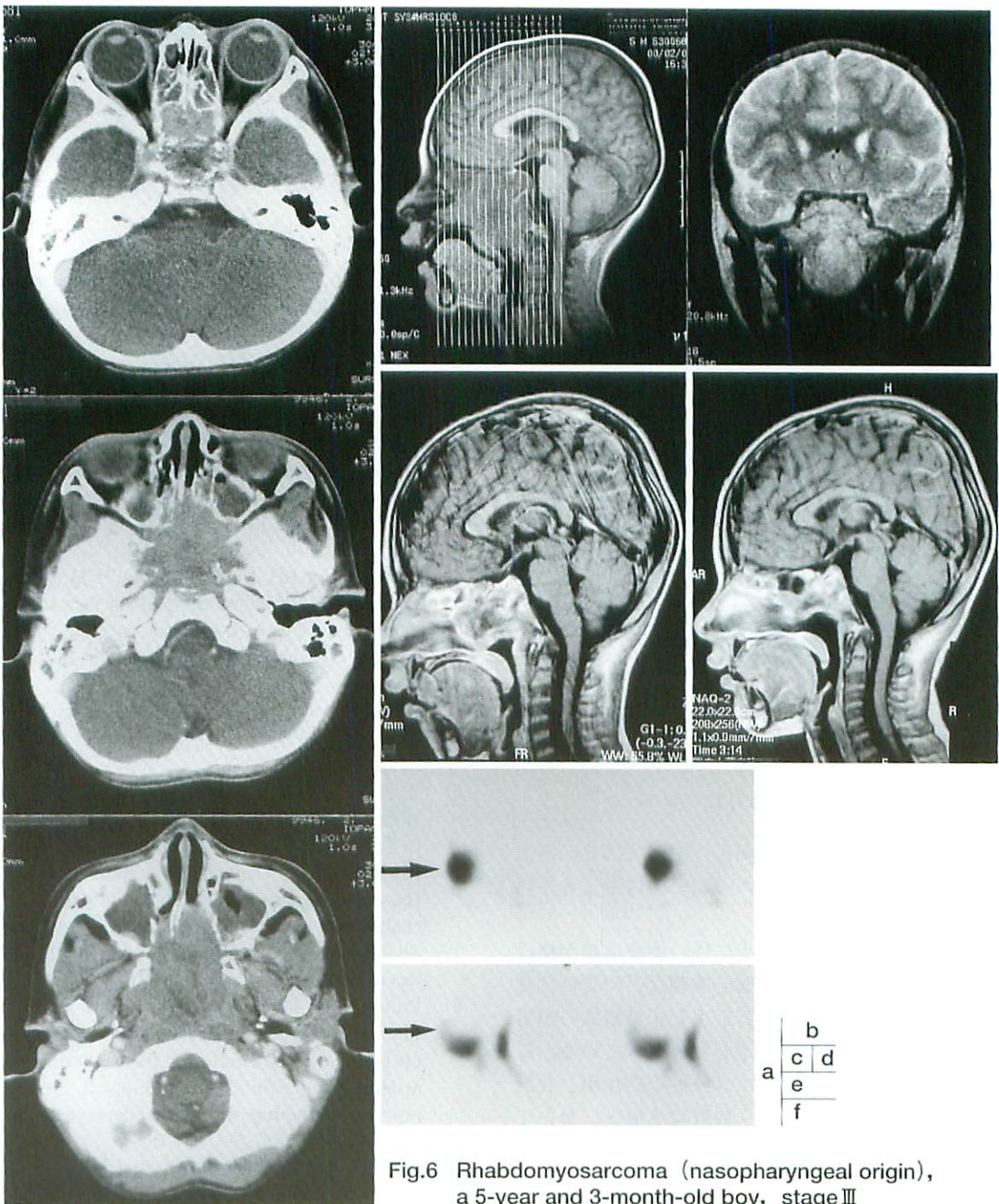


Fig.6 Rhabdomyosarcoma (nasopharyngeal origin), a 5-year and 3-month-old boy, stage III

- a : Enhanced CT revealed huge nasopharyngeal mass with bone destruction of skull base.
 b : MRI showed huge nasopharyngeal mass adjacent to the brain on T1WI.
 c : After radiation therapy (5000cGy/25 fractions/33 days), MRI showed residual mass with Gd enhancement on T1WI.
 d : One year later, MRI showed no mass at the nasopharynx on T1WI.
 e : SPECT of Ga-67-citrate (sagittal view) at first admission showed positive finding in the nasopharynx (arrow).
 f : After radiation therapy (5000cGy/25 fractions/33 days), SPECT of Tl-201-chloride (sagittal view) showed negative finding in the nasopharynx (arrow).



Fig.6
g: Linacography showed huge nasopharyngeal mass in the radiation field.

おわりに

ここに提示した小児がん症例は症例6のみ治療後1年無病生存中であるが、他は全て5年以上無病生存中である。

近年の化学療法の進歩に伴い治療成績が格段に向上したが、まだ横紋筋肉腫などの骨軟部腫瘍は放射線治療から見ると小児正常組織の耐容線量を超えた治療線量が必要とされている。このことは、小児においては放射線副作用、放射線合併症が必発とされ、放射線治療医において小児がんの放射線治療を敬遠する傾向にある。それ故に、正常組織を避けて放射線合併症がないようにする局所コントロールとしての放射線治療の適応を決定するのに必要な条件は、放射線診断医がその腫瘍の局在および進展範囲を明確に診断することであるということを銘記していただきたい。

最後に、小児がんに対して治療方針を検討する国立小児病院Tumor Boardが、小児腫瘍・血

液科医、小児外科医、放射線科医、病理医を中心として多くの診療科医をまとめて、小児がん患者にチームとして取り組んできたことにより、小児がんの治療成績の向上に大きな役割を果たしてきたことを、ここに彼らへの感謝とともに報告して、稿を終わらせて頂きます。

●文献

- 1) INT-0150/POG 9440/CCG 4941 : National Wilms Tumor Study - 5 : Therapeutic Trial and Biology Study.
- 2) 正木英一：放射線療法. 小児がん, 赤塚順一, 土田嘉昭, 藤本孟男, 山崎洋次編：医薬ジャーナル社, 2000, pp.190-205.
- 3) Evans AE, August CS, Kamami N, et al : Bone marrow transplantation for high risk neuroblastoma at the Children's Hospital of Philadelphia : an update. *Med Pediatr Oncol* 1994 ; 23 : 323-327.
- 4) Castleberry RP, Kun LE, Shuster JJ, et al : Radiotherapy improves the outlook for patients older than 1 year with pediatric oncology group stage C Neuroblastoma. *J Clin Oncol* 1991 ; 9 : 789-795.
- 5) 正木英一：神経芽腫におけるI-123 MIBGシンチグラフィの有用性. *日小放誌* 1995 ; 11 : 22-33.
- 6) 正木英一：アイソトープ診断. 小児がん, 赤塚順一, 土田嘉昭, 藤本孟男, 山崎洋次編. 医薬ジャーナル社, 2000 ; pp.149-160.
- 7) Donaldson SS, Asmar L, Breneman J, et al. : Hyperfractionated radiation in children with rhabdomyosarcoma : results of an Intergroup Rhabdomyosarcoma Pilot Study. *Int J Radiation Oncol Biol Phys* 1995 ; 32 : 903-911.
- 8) Raney RB, Tefft M, Newton WA, et al. : Improved prognosis with intensive treatment of children with cranial soft tissue sarcomas arising in nonorbital parameningeal sites : a report from the Intergroup Rhabdomyosarcoma Study. *Cancer* 1987 ; 59 : 147-155.
- 9) Lorberboym M, Baram J, Feibel M, et al : A prospective evaluation of thallium-201 single photon emission computerized tomography for brain tumor burden. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 1995 ; 32 : 249-254.
- 10) Maini CL, Tofani A, Sciuto R, et al : Thallium-201 scintigraphy and chemotherapeutic response in rhabdomyosarcoma. *Clin Nucl Med* 1994 ; 19 : 607-610.

特集 小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療

3. 小児腹部腫瘍の核医学診断

奥山智緒, 牛嶋 陽, 西村恒彦

京都府立医科大学 放射線医学教室

Nuclear Medicine for Pediatric Abdominal Tumors

Chio Okuyama, Yo Ushijima, Tsunehiko Nishimura

Department of Radiology, Kyoto Prefectural University of Medicine

Abstract

The peculiar roles and utility of nuclear medicine for the clinical pediatric oncology are described. The advantage of nuclear medicine is that the accumulations reflect the tumor characteristics and that a single administration can examine the whole body. For tumor imaging, there are some specific and non-specific tracers. Radioactive-iodine-labeled metaiodobenzylguanidine (MIBG) visualizes neuroblastoma with very high specificity. ^{131}I (^{123}I)-MIBG scintigraphy is very useful for the diagnosis, staging, the monitoring during and after the treatment of neuroblastomas.

^{67}Ga scintigraphy and ^{201}Tl are the representative non-specific tumor imaging tracers. These tracers and some specific tracers are also introduced.

Keywords: Pediatrics, Abdominal tumors, Scintigraphy, MIBG scintigraphy

はじめに

小児腫瘍の臨床において、正確かつ迅速に診断を下す目的の上で画像診断の果たす役割は極めて重要である。一般に核医学イメージは、他の形態学的画像診断法に比べて分解能に劣り、小病変の検出は困難である。しかし、一方で核医学検査では腫瘍の生物学的特性を画像化している点が大きな特徴である。小児固形腫瘍として最も頻度の高い神経芽細胞腫においては、Metaiodobenzylguanidine (MIBG) が腫瘍細胞内に特異的に取り込まれるため、その診断、病巣の把握に有用である。1回の放射性医薬品の投与により全身の検索が容易に施行可能であるため、病期診断にも適する。腫瘍シンチ剤にはその他に、 ^{67}Ga citrate (^{67}Ga) や $^{201}\text{TlCl}$ (^{201}Tl) など、腫瘍非特異性のものもあり、さまざまな

腫瘍において核医学検査が施行される。本稿では、 ^{131}I (^{123}I)-MIBGシンチグラフィを中心に各種シンチグラフィ製剤の特徴を説明し、小児の腹部腫瘍に対する核医学検査の有用性と適切な検査の選択法について述べる。

^{131}I -MIBG・ ^{123}I -MIBG

MIBGは、グアナチジンの誘導体であり、ノルエピネフリンと同様にナトリウム依存性のUptake-1により交感神経終末に取り込まれる¹⁾。神経芽細胞腫内においては、同様の機序で取り込まれたのち神経内分泌顆粒内や細胞内に貯留し優れた検出精度 (sensitivity 70~95%, specificity 95~100%) を有する²⁾。

^{131}I -MIBGの場合は、10~40MBqを静注し1日後と2日後に撮像をする。 ^{123}I 製剤を用いる場合には、37~111MBqを静注し、24時間以内

に撮像するのが通常である。甲状腺の被曝を防ぐためにルゴールによる前投薬を行う。

神経芽細胞腫は副腎や全身のあらゆる交感神経節から発生し、骨、骨髄、肝、皮膚などに高率に転移を有する。近年は、乳児マス・スクリーニングの普及により無症状の時期に発見される症例が全体の6割以上を占めている。本疾患が疑われた場合、通常は胸部単純X線写真や腹部超音波により原発腫瘍が同定される。原発腫瘍が同定されなかった場合の検索や、転移巣の検索にシンチグラフィの果たす役割が大きい (Fig.1, 2)。また、本疾患は通常、尿中VMAやHVAの上昇により容易に診断されるが、マーカーの上昇が見られないことがあり、MIBGの集積が診断に結びつく場合もある。

神経芽細胞腫の骨転移の検索には他の腫瘍と同様に骨シンチが使用されることも多いが、骨シンチでは骨皮質の転移しか捉えられないため骨髄転移を検出することはできず (Fig.3)、MIBGシンチの併用により骨髄転移と骨転移の

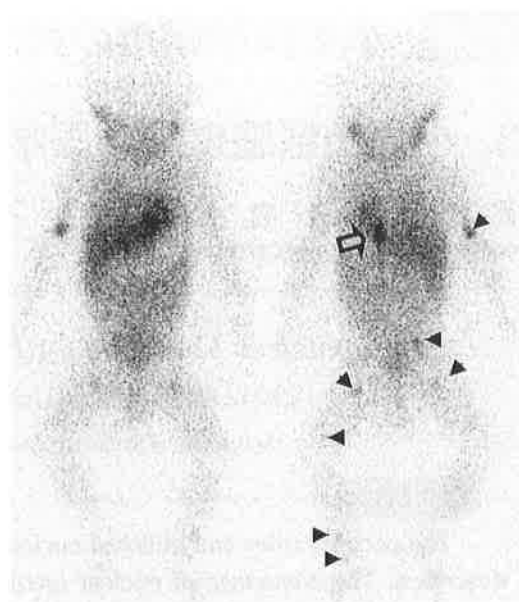


Fig.1 A case of neuroblastoma discovered by mass screening (a 1-year-old girl)

^{123}I -MIBG demonstrates mediastinal tumor (open arrow) and some skeletal lesions (arrowheads).

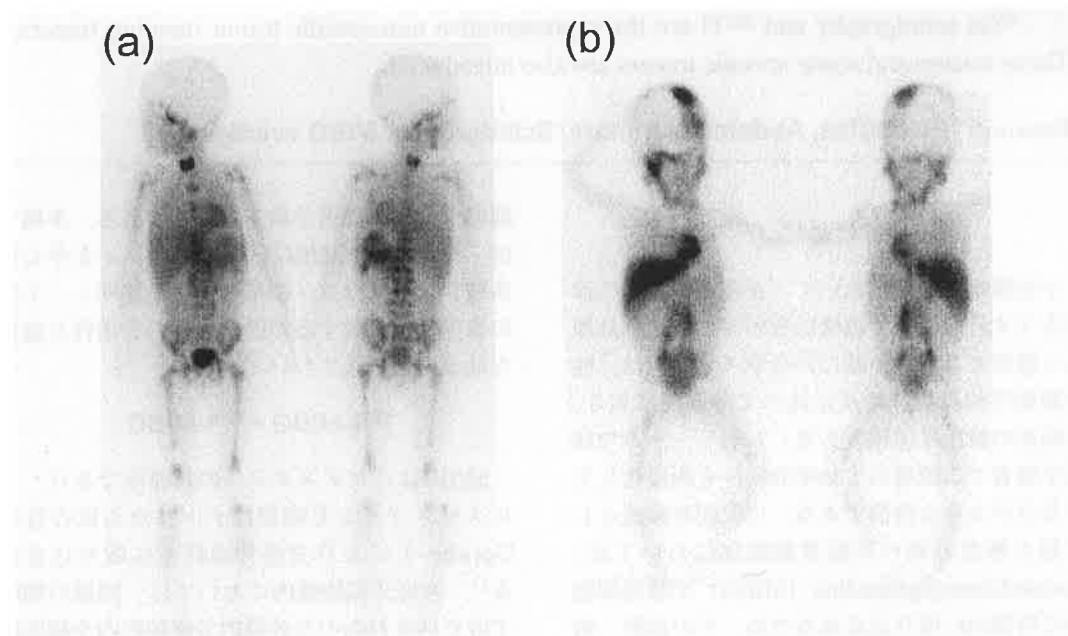


Fig.2 Two cases of advanced neuroblastomas of a 4-year-old girl (a) and an 11-month-old girl

a : ^{123}I -MIBG demonstrates a large primary tumor originating from the left adrenal gland, and diffuse bone marrow metastases.

b : ^{123}I -MIBG shows not only a small accumulation in the primary tumor originating in the right adrenal gland but also multiple abnormal accumulations in the skull, orbits, and other skeletal lesions of the lower extremities and left supraclavicular and paraaortic lymph node metastases.

鑑別が可能となる³⁾。病期診断には初めにMIBGを施行し、異常が見られた場合に骨シンチを追加することが望ましい。

MIBGは腫瘍細胞への特異的な集積機序を有しているため、集積が治療による変化を受けにくく、治療効果を正確に反映して描出されることも特徴である⁴⁾。化学療法に対する反応性は腫瘍マーカーと同様に集積程度や範囲の変化として現れ、反応性をみると同時に病変部位の把握が可能である。骨・骨髄病変はときに治癒後にも癒痕、出血などを残し、MRIや骨シンチで異常所見が残存することもあるが⁵⁾、MIBGでは偽陽性を呈することはない。また、治療後の経過観察においても再発病変を鋭敏に検出できる (Fig.4)。筆者らは、腫瘍マーカーが正常値を示しMIBGで検出できた再発を複数経験しており、定期的なMIBGでの経過観察が重要であると考えている。

MIBGシンチグラフィは、神経芽細胞腫以外に褐色細胞腫やパラガングリオーマ、カルチノイド、甲状腺髄様癌などにも集積し、MEN-II型などの遺伝性疾患での全身検索にも有用と考えられている⁶⁾が、現在日本において、腫瘍シンチ製剤としては¹³¹I-MIBGのみが保険適応となっており¹²³I-MIBGの適応は認可されていない。¹³¹I製剤は半減期が8日と長く、 γ 線のみならず β 線を放出するために被曝量が多いこ

とに加え、 γ 線のエネルギーが高く、投与可能量が少ないために得られる画質が¹²³I製剤と比べるとはるかに劣っている (Fig.5)。小児患者

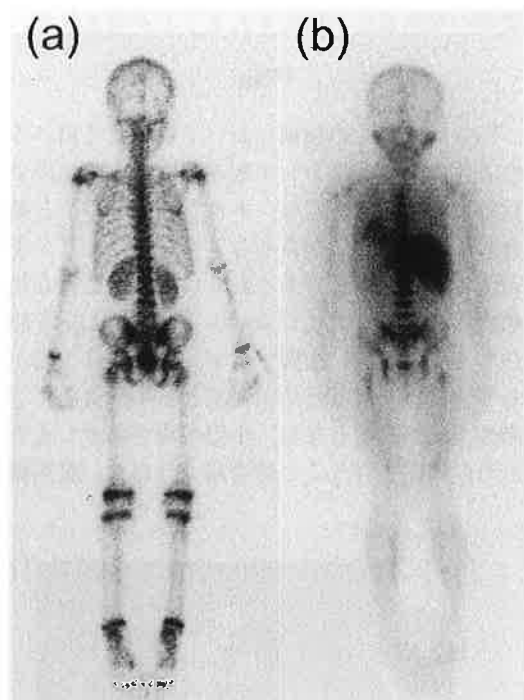


Fig.3 Diffuse bone marrow relapse of neuroblastoma of a 7-year-old boy

Bone scan (a) shows an almost normal image, while abnormal visualization of the diffuse bone marrow is seen on ¹²³I-MIBG scintigraphy (b).

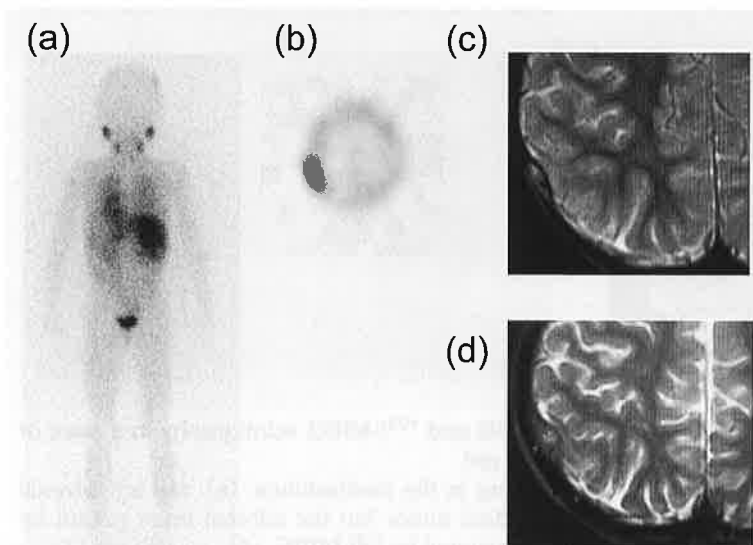


Fig.4 Relapse of neuroblastoma in the skull of a 4-year-old girl

A follow-up ¹²³I-MIBG scintigraphy reveals abnormal accumulation in the head (a: whole body image, b: SPECT). Biochemical markers were within normal limits, and abnormality could not be easily detected by MRI T2WI (c) at the same time. One month later, the tumor was detected in the following MRI T2WI (d).

の被曝量軽減，検出能の向上のためには ^{123}I 製剤が適するが，多くの施設において保険請求上の都合で ^{131}I 製剤がやむなく用いられている現状は残念であり，患児のために一日も早く ^{123}I 製剤の保険適応が拡大されることが望まれる。

^{67}Ga

^{67}Ga は，多くの腫瘍において最もよく用いられる代表的な腫瘍シンチ製剤である。生体内では鉄と似た動態を示し，トランスフェリンと結合して腫瘍細胞に存在するトランスフェリン受容体に結合すると考えられているが，正確な集積機序は解明されていない。37～111MBqを静注し2～3日後に撮像するが，本製剤は大腸から分泌排泄されるため前処置として撮像前に下剤や浣腸が必要となる。小児の場合必ずしもそれら前処置を行うことは容易ではなく，腹部腫

瘍の精査の場合，それらの生理的分布の影響を軽減するためにはSPECT撮像を追加することが望ましい。

本剤は，腫瘍においては非特異的にさまざまな腫瘍に集積し，腫瘍以外にも炎症巣にも高いsensitivityを有している。一般的には良性腫瘍には集積せず，分化度の高いものよりも未分化なものとの親和性が高い。臨床的に最も有用性が高いのは悪性リンパ腫であり，70～90%以上の陽性率を有する⁷⁾。その集積は特異的に強く，全身を一度に検索できるため病期診断，治療効果判定，経過観察に有用である (Fig.6)。

その他の疾患に対しては，軟部肉腫への集積が70～90%程度，神経芽細胞腫の検出率は50%以下，Wilms腫瘍では50%程度で，肝芽腫や奇形腫などには通常集積しない⁸⁾。また，筆者らは小児腎細胞癌での陽性例 (Fig.7)，腭芽腫で

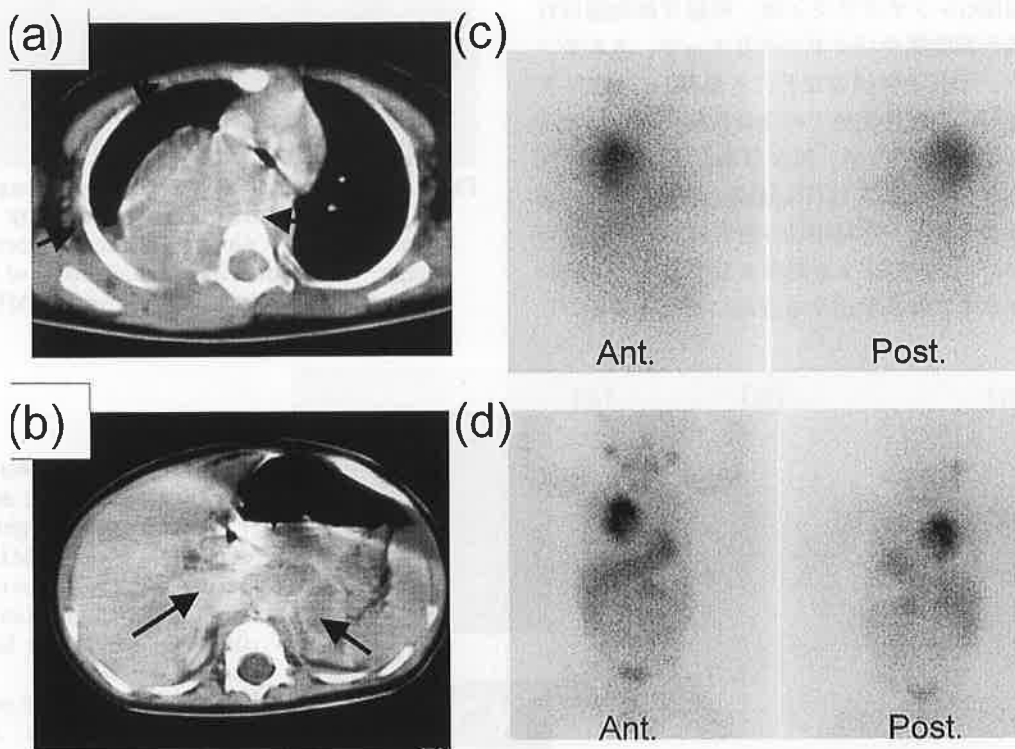


Fig.5 Comparison of the images between ^{131}I -MIBG and ^{123}I -MIBG scintigraphy in a case of multicentric neuroblastoma of an 8-year-old girl

The patient has two big neuroblastomas originating in the mediastinum (a) and left adrenal gland (b). ^{131}I -MIBG demonstrates the mediastinal tumor but the adrenal mass cannot be detected (c), while both tumors are clearly demonstrated by ^{123}I -MIBG (d).

の陽性例，肝未分化肉腫での偽陰性例を経験している。

^{67}Ga の生体内での動態には前述のようにトランスフェリンが関与するため，輸血や鉄剤の投与により血中のトランスフェリンが鉄で飽和されている状態（低UIBC血症）では腫瘍への集積を示さないことがある⁹⁾。 ^{67}Ga 陽性の腫瘍の治療効果判定や経過観察に再度 ^{67}Ga シンチグラフィが施行されるが，肝集積が低下し腎臓や骨の集積が亢進している場合には低UIBC血症が考えられ，腫瘍の集積を評価できなくなることを認識しておかねばならない（Fig.8）。

^{201}Tl

^{201}Tl は， K^+ と類似の挙動を示し， Na-K ATPase により能動的に腫瘍内に入ると考えられているが，他に，血流や Ca チャンネル，細胞膜透過性などさまざまな要素が集積に影響を及ぼすとされる¹⁰⁾。 $37\sim111\text{MBq}$ を静注し，投与5～10分後の早期像と3～4時間後の後期像



(b)



Fig.7 ^{67}Ga scintigrams of renal cell carcinoma in a 12-year-old girl

^{67}Ga accumulates in the renal mass.

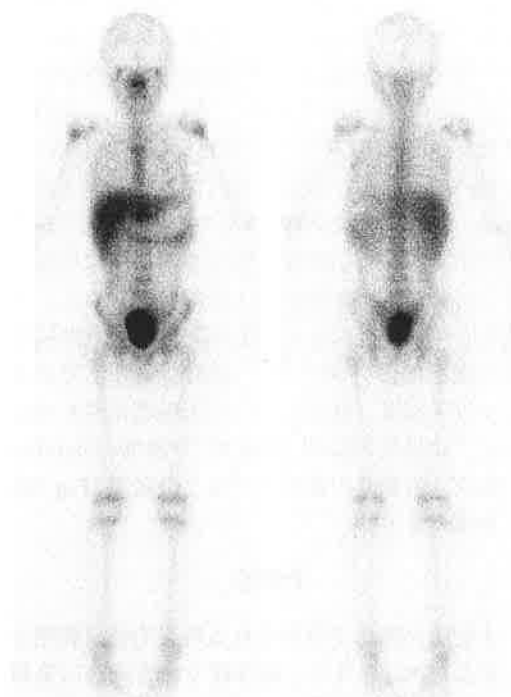


Fig.6 A case of lymphoma of a 9-year-old boy
 ^{67}Ga scintigram shows an apparent accumulation in the pelvis.

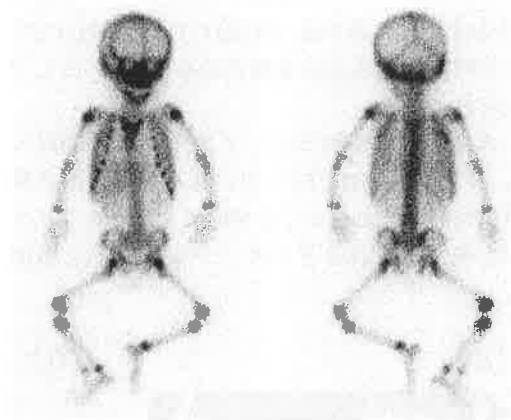


Fig.8 ^{67}Ga scintigrams of a case of lymphoma during the chemotherapy (a 3-year-old boy)

He has a large tumor in the upper abdomen. ^{67}Ga shows no accumulation in the tumor. Moreover the scintigram shows remarkably decreased accumulation in the liver, spleen, lachrymal glands, and salivary glands and increased uptake in the bones and both kidneys is faintly visualized. His UIBC was very low because of transfusion.

を撮像する。早期像においては炎症巣や良性病変にも集積しうるが、後期像でも集積が残存するのは悪性病変が多く、肺腫瘍や骨軟部腫瘍における検討が多くなされている¹¹⁾。本剤は肝臓、腎臓や腸管への生理的分布が強いうえ、 γ 線のエネルギーが低く体内での吸収が大きいいため、腹部腫瘍の精査のためにはSPECTが必要である。また、腸管への分布は血流に依存するため検査前に3時間以上の絶食を行うことが望ましい。小児においても脳腫瘍や骨軟部腫瘍での検討が多いが^{12,13)}、適切な条件下で検査を施行すれば、腹部においても腫瘍集積を確認でき、良悪性の鑑別 (Fig.9) や腫瘍のviabilityの検査、治療後の瘢痕と再発との鑑別 (Fig.10) に有用である。

その他

小児腹部腫瘍で用いられる特異的腫瘍製剤としてはMIBG以外に、血管腫や血管肉腫に集積する ^{99m}Tc -RBCや ^{99m}Tc -HSA (D) (Fig.11) がよく知られており¹⁴⁾、肝腫瘍や後腹膜腫瘍に用いられることがある。また、mesoblastic nephromaに ^{99m}Tc -DMSAが集積し¹⁵⁾、肝臓の限局性結節性過形成 (FNH) には ^{99m}Tc -PMTや ^{99m}Tc -Sn-colloidの集積がみられる¹⁶⁾ ことが知られている。

非特異的腫瘍製剤としては ^{67}Ga や ^{201}Tl 以外に、 ^{99m}Tc -MIBIが時に用いられる。本剤は膜電位勾配にしたがって受動的にミトコンドリア内に取り込まれるとされ、分布は ^{201}Tl と類似

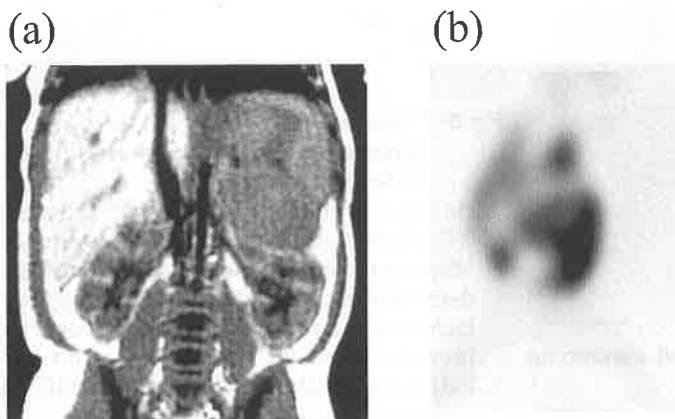


Fig.9 Adrenal carcinoma of a 7-month-old boy

MRI T1 weighted coronal image shows a large mass on the left kidney (a), and ^{201}Tl SPECT demonstrates abnormal accumulation (b).

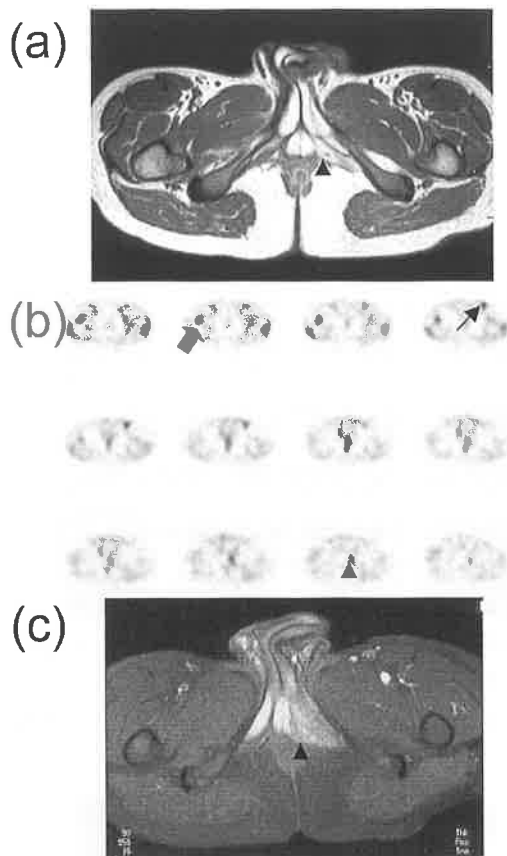


Fig.10 Local recurrence of rhabdomyosarcoma of an 11-year-old boy

MRI showed abnormal signal in the left internal obturator muscle (a), but could not differentiate between post-treatment-granulation and recurrence, because no change was seen compared with the previous studies. ^{201}Tl SPECT showed abnormal accumulation (arrowhead) (b) at the lesion. Follow up MRI revealed regrowth of the local tumor (c). ^{201}Tl SPECT also demonstrates unexpected metastases in the right femoral bone (thick arrow) and left inguinal lymph node (thin arrow).

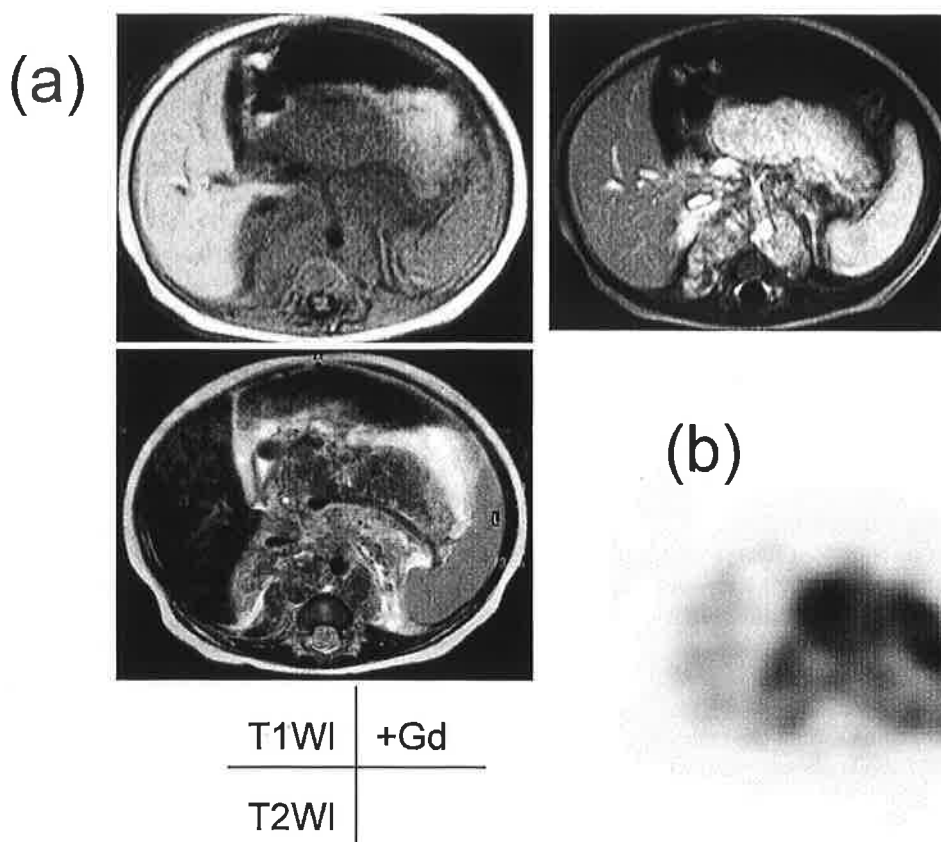


Fig.11 A huge hemangioma in the retroperitoneum of an 8-month-old boy

The MRI (a) shows a large tumor, which shows low signal on T1WI, low and high signals on T2WI, and good enhancement. ^{99m}Tc -HSA (D) SPECT (b) shows intense accumulation corresponding with the tumor.

している。抗癌剤の多剤耐性に関与するP糖蛋白により細胞外に汲み出されるとされており、腫瘍の抗癌剤耐性を画像化する製剤として成人の肺癌や骨軟部腫瘍での研究が進められている^{17,18)}。小児腫瘍での報告は少なく腹部の生理的分布が多いため読影には細心の注意が必要であるが、各種腫瘍の治療効果予測の判定材料として期待される¹⁹⁾。

おわりに

核医学検査は、空間分解能がCT, MRIと比べて低く、正確な病変部の指摘や進展範囲の診断が容易ではない。小児の被曝に対する警戒心も強く敬遠されることも多いようであるが、疾患によっては感度や特異性が非常に高く、簡便

に全身像が得られるため、適応を正しく選んで用いることで臨床的に価値の高い検査となる。

●文献

- 1) Wieland DM, Wu JL, Brown LE, et al: Radiolabeled adrenergic neuron blocking agent: adrenomedullary imaging with [^{131}I]-iodobenzylguanidine. J Nucl Med 1980; 21: 349-353.
- 2) Shulkin BL, Shapiro B: Current concepts on the diagnostic use of MIBG in children. J Nucl Med 1998; 39: 679-688.
- 3) 奥山智緒, 牛嶋 陽, 杉原洋樹, 他: ^{123}I -MIBGシンチグラフィを用いた神経芽細胞腫の診断-病期分類のための撮像方法の検討-. 核医学1998; 35: 835-842.
- 4) Maurea S, Lastoria S, Caracó C, et al: Iodine-

- 131-MIBG imaging to monitor chemotherapy response in advanced neuroblastoma: Comparison with laboratory analysis. *J Nucl Med* 1994; 35: 1429-1435.
- 5) Tanabe M, Takahashi H, Ohnuma N, et al: Evaluation of bone marrow metastasis of neuroblastoma and changes after chemotherapy by MRI. *Med Pediatr Oncol* 1993; 21: 54-59.
 - 6) Moll LV, McEwan AC, Shapiro B, et al: Iodine-131 MIBG scintigraphy of neuroendocrine tumors other than pheochromocytoma and neuroblastoma. *J Nucl Med* 1987; 28: 979-988.
 - 7) McLaughlin AF, Magee MA, Israel O, et al: Current role of gallium scanning in the management of lymphoma. *Eur J Nucl Med* 1990; 16: 755-771.
 - 8) Edeling CJ: Ga-67 imaging in pediatric oncology. *Clin Nucl Med* 1983; 8: 205-209.
 - 9) Roswig DM, Spencer RP: Decreased hepatic concentration of radiogallium-⁶⁷Ga. *Semin Nucl Med* 1984; 14: 57-58.
 - 10) 利波紀久: 腫瘍のタリウム診断. *核医学* 1993; 30: 449-455.
 - 11) Tonami N, Shuke N, Yokoyama K, et al: Thallium-201 single photon emission computed tomography in the evaluation of suspected lung cancer. *J Nucl Med* 1989; 30: 997-1004.
 - 12) Nadel HR: Thallium-201 for oncological imaging in children. *Semin Nucl Med* 1993; 23: 243-254.
 - 13) Howman-Giles R, Uren RF, Shaw PJ: Thallium-201 scintigraphy in pediatric soft tissue tumors. *J Nucl Med* 1995; 36: 1372-1376.
 - 14) Murata Y, Yamada I, Umehara I, et al: The use of three-phase scintigraphy for diagnosing hemangiomas of the extremities. A clinical evaluation. *Clin Nucl Med* 1997; 22: 372-375.
 - 15) Cowling MG, Dicks- Mireaux C, Gordon I: A Further diagnostic test in neonatal / infant solid renal mass: two cases of mesoblastic nephroma showing uptake of Tc-99m-DMSA. *Clin Radiol* 1993; 47: 259-261.
 - 16) D'Souza VJ, Sumner TE, Watson NE, et al: Focal nodular hyperplasia of the liver imaging by differing modalities. *Pediatr Radiol* 1983; 13: 77-81.
 - 17) Taki J, Sumiya H, Asada N, et al: Assessment of P-glycoprotein in patients with malignant bone and soft tissue tumors using technetium-99m MIBI scintigraphy. *J Nucl Med* 1998; 39: 1179-1184.
 - 18) Luker GD, Fracasso PM, Tobkin J, et al: Modulation of the multidrug resistance P-glycoprotein: Detection with Tc-99m sestamibi *in vivo*. *J Nucl Med* 1998; 38: 369-372.
 - 19) Burak Z, Yüksel DA, tingül N, et al: The role of ⁹⁹Tc^m-sestamibi scintigraphy in the staging and prediction of the therapeutic response of stage IV neuroblastoma: Comparison with ¹³¹I-MIBG and ⁹⁹Tc^m-MDP scintigraphy. *Nucl Med Commun* 1999; 20: 991-1000.

特集 小児腹部腫瘍の画像診断と放射線治療

4. 小児腹部腫瘍の画像診断—副腎・泌尿生殖器—

野坂俊介, 堤 義之¹⁾, 岡田良行¹⁾, 正木英一

国立小児病院 放射線科, 国立大蔵病院 放射線科¹⁾

Imaging Characteristics of Abdominal Tumors —Adrenal Gland and Genitourinary Tract—

Shunsuke Nosaka, Yoshiyuki Tsutsumi¹⁾, Yoshiyuki Okada¹⁾, Hidekazu Masaki

Department of Radiology, National Children's Hospital

Department of Radiology, National Ookura Hospital¹⁾

Abstract

This review outlines imaging characteristics as well as clinical features of tumors involving the adrenal gland and genitourinary tract in children. Of these, neuroblastoma, adrenocortical carcinoma, pheochromocytoma, Wilms tumor, nephroblastomatosis, congenital mesoblastic nephroma, rhabdoid tumor of the kidney, clear cell sarcoma of the kidney, renal cell carcinoma, renal involvement secondary to hematologic malignancies, ovarian tumor and rhabdomyosarcoma are included. Age dependent approach is important to differentiate these tumors. Plain radiograph has a limited role in diagnosing abdominal tumor. A variable combination of ultrasound, CT and MRI is important to reach an accurate diagnosis. Nuclear imaging is reserved for selected purposes to evaluate primary and metastatic disease and tumor viability.

Keywords: Children, Abdominal tumor, Adrenal gland, Genitourinary tract, US, CT, MRI, Nuclear imaging

はじめに

腹部腫瘍に対する画像診断検査には、単純X線写真（単純写真）、超音波検査（US）、CT、MRI、核医学検査、消化管造影や血管造影がある。通常、小児画像診断を行う上で重要なことは、小児の身体的特徴を考慮した上で、必要かつ十分な検査計画を立てることである。これらの基本的な事項は、腹部腫瘍の画像診断においても例外ではない。

本稿では、小児腹部腫瘍の画像診断に対する各種画像診断検査法を解説したのち、副腎・泌尿生殖器の代表的腫瘍性病変の診断をすすめる

うえで必要な臨床的特徴および画像所見について解説する。

画像診断総論^{1, 2)}

腹部腫瘍の多くは腹部腫瘍を主訴とする場合が多いが、そのような患児に対して画像診断を行う上で重要なことは、腫瘍の存在部位と腫瘍の性状および腫瘍の進展範囲を正確に把握することである。さらに腫瘍性病変をみとめた場合、外科的切除が可能か否かの判定も重要である。

一般的に、小児の腹部腫瘍は、患児の年齢によりその発生部位が異なる。通常、新生児期では、腹部腫瘍の発生部位は、腎臓(55%)、内性

器(15%), 消化管(15%), 腎以外の後腹膜(10%) および肝胆道系(5%)の順である。ところが、乳児期以降になると、腎臓(55%), 腎以外の後腹膜(23%), 消化管/肝胆道系(18%), 内性器(4%)となる。

以下、各検査法について解説する。通常、CTやMRIは、被検患児が4～5歳以下の場合は鎮静剤を投与して検査すべきである。鎮静方法は各施設により様々で、現状では担当医に一任している場合が多い。筆者らの施設では、他の検査法に比べ検査時間の長いMRIについては麻酔科医の協力により、必要に応じて全身麻酔下で実施することがある。核医学検査は、検査時に被検患児の体動を抑制する砂嚢などを適切に配置するなどの工夫で満足できる画像が得られる場合が多い。血管造影は、通常被検患児が10歳以下の場合は全身麻酔下に行うべきで、麻酔科医の協力が必須である。

a. 単純写真

単純写真の意義は、後述するUS、CTあるいはMRIの普及にともなって低くなった。単純写真では触知される腹部腫瘍と消化管ガス像との関係、腫瘍内石灰化巣の有無と性状、腹水の有無、さらには骨格系の異常の有無を評価する。

b. US

USは単純写真に次ぐ検査法で、無侵襲、簡便かつ任意の断面で腫瘍の評価ができる。特に、新生児や乳児はUSに適した体格で、5.0MHz以上の高周波探触子を使用可能で、高解像度の画像が得られる。通常はUSのみでほとんどの情報が得られる。また、USではカラードップラあるいはパワードップラにより血流情報も得られるが、呼吸停止など患児の協力が必要となる。USの欠点は所見が術者の技量に依存することおよび所見の再現性が低いことである。一般的に腫瘍が大きい場合や、続いて外科的治療が予定されている場合はCTやMRIが追加される。なお、USはすでに診断の確定している病変の治療効果判定や経過観察に適している。

c. CT

ヘリカルCTの導入により画像解像度は、従来型のCTと比較して向上し、検査時間も短縮した。また、ヘリカルCTでは、被曝線量が減少

し、患児が動かず安静呼吸の状態であればほとんどアーチファクトのない画像が得られる。CTは造影CTが必須で、通常造影剤(300mgI/ml)は2ml/kgを用手的にボラス注入するかインジェクターを用いて注入し撮像する。さらに最近ではマルチスライスヘリカルCT(MDCT)が臨床導入され、急速に普及しつつある。MDCTでは検査時間は飛躍的に短縮し、患児の被曝線量もこれまで以上に減少した。またMDCTにより、正確な3次元画像を得ることも可能になった。

d. MRI

MRIの利点は、被曝することなく優れた軟部組織分解能を有する画像が任意の断面で得られることである。最近では、高速撮像法の導入により検査時間が大幅に短縮した。MRIでは腫瘍と隣接する脈管との関係、腫瘍が後腹膜に存在する場合は脊柱管内への進展の有無、および腫瘍内の出血の有無をはじめとする腫瘍内容の評価が容易に行える。

e. 核医学検査

US、CTおよびMRIの導入により核医学検査が行われる頻度は少なくなったが、核医学検査が有用な疾患・病態は、神経芽腫の原発巣および転移巣の検索における¹²³I MIBGシンチ、神経芽腫をはじめとする原発性悪性腫瘍の骨転移検索における^{99m}Tc MDP骨シンチおよび腫瘍のactivityを評価する⁶⁷Ga citrateを用いたシンチなどである。

f. 消化管造影

消化管造影は、US、CTおよびMRIが普及した今日では、腫瘍が消化管由来かあるいは消化管と密接に関係する場合を除き、行われることは少なくなった。

g. 血管造影

血管造影は、診断のみを目的として行われることはほとんどなくなった。今日では、血管造影は術前あるいは手術不可能例に対する経カテーテル的治療(Interventional Radiology)を目的に行われることがほとんどである。

画像診断各論

副腎

神経芽腫(Neuroblastoma)^{2~8)}

神経芽腫は神経提から発生する腫瘍で、小児領域では中枢神経系を除いた固形腫瘍では最多である。神経芽腫は90%が5歳までに診断される。神経芽腫の65%は後腹膜に発生し、そのうち40%が副腎髄質由来である。この項では副腎のみならず副腎外の後腹膜腔から発生する神経芽腫についても述べる。

わが国では、神経芽腫に対するマスキングが普及している。マスキングで発見された神経芽腫の多くは予後良好で、N-myc遺伝子の増幅は例外的である。マスキングで発見されたstage Iの神経芽腫で、その大きさが5 cm以下の場合は無治療で経過観察し、定期的にUSで大きさを計測し、尿中のVMA、HVAの推移を見るという試みもある。実際にはこの方法で多くのマスキング検査陽性stage I 神経芽腫の自然退縮が確認されており、今後は症例を重ねて検討されるべきであろう。

その他、神経芽腫の特殊型としては、stage IV-S（原発巣が原発臓器に限局し正中を越えないで、転移が肝、皮膚および骨髄に限局し、骨皮質には転移がない）があり、通常は生後6ヵ月未満に見られ予後良好である。

神経芽腫は、単純X線写真では腫瘍が大きい場合は軟部腫瘍影として認識できる（Fig.1a）。腹部神経芽腫の腫瘍内石灰化は55%と言われている。

USでは神経芽腫は充実性で不均一高エコーを示すことが多い（Fig.1b）。腫瘍内石灰化は高エコー巣として認められる。腫瘍と肝や腎臓との関係はリアルタイムに評価できる。一般的に病変が大きい場合はCTあるいはMRIが有用である（Fig.1c-e）。

CTは腫瘍の性状および拡がり进行评估する点でUSを凌ぐ。腫瘍内の石灰化は腹部原発神経芽腫の場合は90%以上の頻度で認められる。造影CTにより腫瘍と大血管の関係を評価できる（Fig.2）。

神経芽腫の画像診断においてMRIの方がCTやUSより優れている点は、多断面で評価可能であること、脊柱管内への腫瘍の進展が評価できる（Fig.3）こと、骨髄浸潤の評価ができるこ

と、および造影剤を投与することなく隣接する脈管に対する影響を評価できることなどである。神経芽腫はMRI T1強調画像では低信号を、T2強調画像では高信号を呈する（Fig.1d,e）。さらに、stage IV-Sの場合、肝内に無数に広がる転移巣はCTで認識困難な場合があるが、MRI T2強調画像では高信号巣として容易に認識できる（Fig.4）。しかし、治療に伴う信号の変化の意義については未だ明確ではない。

骨シンチは骨転移の評価に用いられる。また骨シンチでは約70%の神経芽腫症例において原発巣への核種の集積が認められるが、その機序は不明である。¹²³I MIBGシンチでは、原発巣（Fig.1f）に加え転移巣にも核種が集積する。MIBGの骨格系への集積については、骨皮質への集積と骨髄への集積は区別できないという欠点がある。従って、骨シンチが正常で、¹²³I MIBGシンチで集積があれば骨髄転移といえる。¹²³I MIBGシンチの問題点は、神経芽腫に対して保険適応外であることで、今後解決されなければならない。

副腎皮質癌（Adrenocortical carcinoma）⁵⁾

副腎皮質癌は、小児ではまれであるが、小児例の75%が診断時5歳以下である。副腎皮質癌は女兒に多い。副腎皮質癌はBeckwith-Wiedemann症候群や半身肥大症に合併する。副腎皮質癌の75%以上が機能性で、多くの場合はアンドロゲン産生に伴う男化徴候を呈する。鑑別診断は、腺腫、神経芽腫、および褐色細胞腫である。ホルモン産生を伴う副腎の腫瘍を診た場合は副腎皮質癌を考慮する必要がある。診断時、副腎皮質癌は大きく（直径6cm以上）、石灰化する場合もある（Fig.5a）。一方、副腎腺腫は小さく、機能性の場合も非機能性の場合もある。腫瘍の良悪の鑑別は組織学的にも困難である。したがって、悪性の場合、被膜への浸潤および転移により診断される。

USでは、特徴的な高エコーの癆痕を認める。CTでは、腫瘍は不均一で、造影剤投与により不規則に造影増強効果を示す（Fig.5b）。腫瘍は局所浸潤を示し、しばしば下大静脈へ進展し、さらに右房におよぶこともある。MRIでは、原

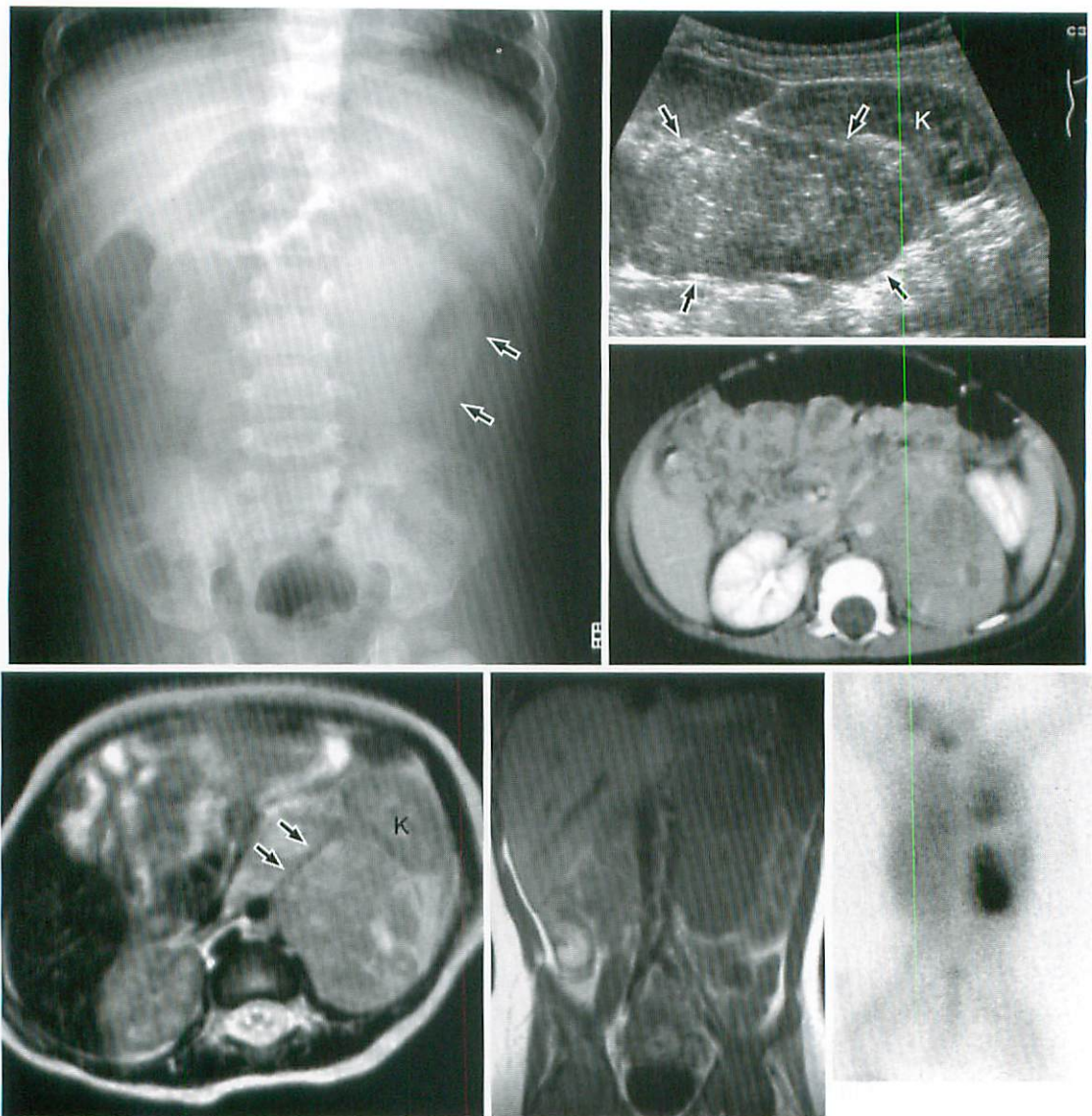


Fig.1 Neuroblastoma

A 9-month-old boy with a positive result of mass screening. A plain abdominal film (a) reveals downward displacement of the left kidney (arrows). A longitudinal view of the abdominal Ultrasound (b) shows a well defined mass (arrows) slightly hyperechoic comparing with the left kidney (K). Contrast-enhanced CT of the abdomen (c) reveals a mass in the left paraaortic region. Axial T2-weighted image of the abdomen (d) demonstrates a well defined intermediate signal mass in the left paraaortic region displacing left renal artery (arrows) as well as the left kidney (K). A coronal T1-weighted image of the abdomen (e) shows a well defined mass with signal intensity similar to that of muscle in the left paraaortic region. Note the left kidney displaced inferiorly as suspected on the plain abdominal film. Subsequent ^{123}I MIBG scan (f) shows an abnormal area of increased uptake corresponding to the mass.

(Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology,
St. Marianna University School of Medicine)

a	b
c	d
e	f



Fig.2 Neuroblastoma

A 3-year-old boy with stage IV neuroblastoma arising from left adrenal gland. Contrast-enhanced CT of the abdomen reveals a large mass in the left suprarenal region with extension of the tumor to the pancreas (arrows). Anterior displacement of the abdominal aorta is demonstrated (arrowhead).

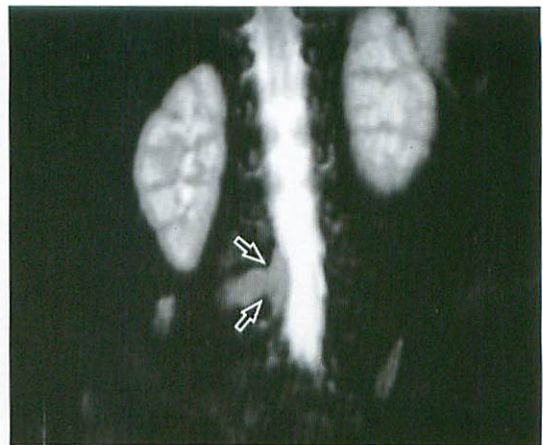


Fig.3 Neuroblastoma arising from paraspinal ganglion

An 8-month-old boy with a positive result on mass screening. Ultrasound of the right lower abdomen (not shown) reveals a well defined mass in the paraspinal region. Subsequent coronal T2-weighted MR image demonstrates a well defined intermediate signal mass extending into the spinal canal (arrows). (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

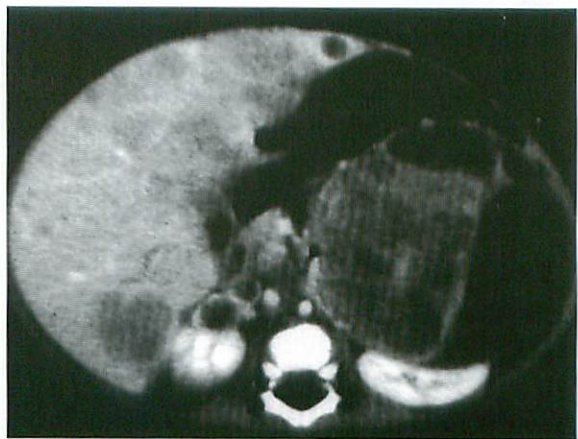


Fig.4 Neuroblastoma with hepatic involvement

a | b

A 3-month-old boy presented with abdominal distension. T2-weighted MR image (a) demonstrates bilateral adrenal tumors larger on the left. Multiple hepatic metastases are well recognized as high intensity foci. Metastatic lesions in the liver, however, are not clearly recognized on contrast-enhanced CT (b). (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

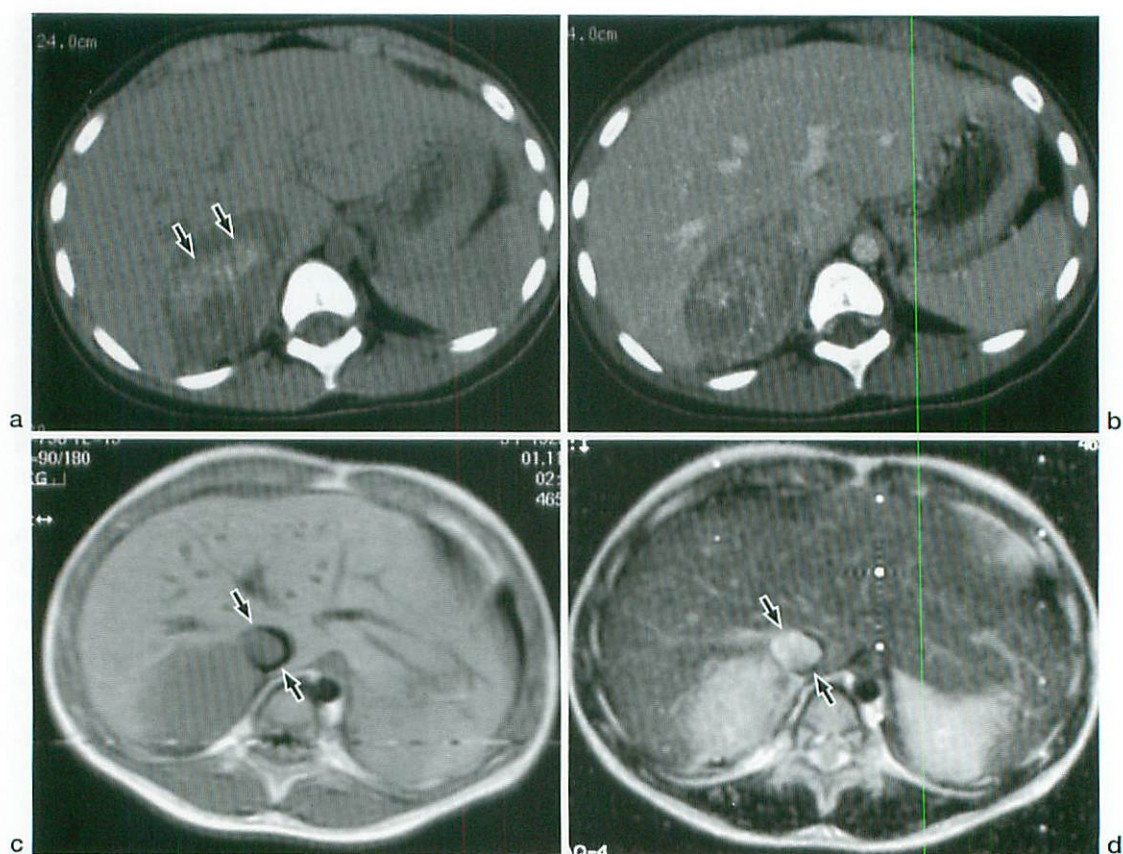


Fig.5 Adrenocortical carcinoma

A 3-year-old girl presented with virilization. Nonenhanced CT of the abdomen (a) reveals a mass in the right suprarenal region with internal calcification (arrows). Subsequent contrast-enhanced CT reveals heterogeneous enhancement of the tumor with possible extension of the tumor to the IVC. Both T1-weighted (c) and T2-weighted (d) images of the abdomen clearly demonstrate tumor as well as tumor extension into the IVC (arrows). The patient underwent surgery and the postoperative pathological diagnosis was adrenocortical carcinoma.

発症に加え、下大静脈への進展 (Fig.5c, d) や肝転移を描出することができる。副腎皮質癌の予後は不良で、外科的切除が第一選択の治療となる。

褐色細胞腫 (Pheochromocytoma) 3, 5)

褐色細胞腫は、小児領域ではまれである (全体の約5%が小児に発生)。神経芽腫同様、褐色細胞腫は神経提由来で、副腎髄質あるいは交感神経節に発生し、カテコールアミンを分泌する。褐色細胞腫の約70%が副腎髄質由来で、両側発生は約5%で、悪性褐色細胞腫の頻度も約5%である。褐色細胞腫は神経線維腫症、von Hippel-Lindau病、あるいはSturge-Weber

syndromeに合併する。多発性内分泌腺腫症に合併する褐色細胞腫は両側性で、悪性の場合が多い。

褐色細胞腫の症状は、通常、腫瘍が分泌するカテコールアミンの作用による持続性あるいは発作性の高血圧に起因する頭痛である。また、褐色細胞腫は、高血圧の精査中に発見される場合もある。

褐色細胞腫を疑った場合は、 ^{123}I MIBGスキャンを行うとよい (保険適応外であるが)。MIBGスキャンで異常集積を認めたら次にCTかMRIを行う。もちろん、核医学検査の設備が無い場合は、はじめにUSを行い、続いて、CTかMRIが選択される。CTで造影を行う場合は、事前

に高血圧発作に対する治療の準備をする必要がある（一般的に、褐色細胞腫に対しては造影剤の投与は禁忌である）。褐色細胞腫は、USやCTでも描出可能であるが、MRIは他疾患との鑑別に役立つ。MRI T1強調画像では肝実質より低信号を、T2強調画像では著明な高信号を呈する。しかしながら、画像所見からは良悪性の鑑別は不可能である。悪性褐色細胞腫の診断は、肝臓、肺、骨やリンパ節などクロム親和性細胞以外の臓器への転移がある場合に確定できる。

褐色細胞腫に対しては、外科的切除が第一選択の治療法となる。

腎

腎芽腫 (Wilms tumor)^{1~3, 9, 10)}

腎芽腫は胎児期の腎組織の遺残から発生する悪性腫瘍である。腎芽腫の約80%が1~5歳に診断される（ピークは3~4歳）が、性差はない。腎芽腫は腹部腫瘍を主訴に発見されることが最も多い（75~95%）。両側性の腎芽腫の頻度は4~13%で、多くは同時発症である。両側性腎芽腫は、片側性の場合と比較して若年で発症し、合併する先天奇形の頻度が高く、nephroblastomatosisの頻度が高い。先天奇形を伴った腎芽腫は若年で発症する傾向にある。腎芽腫に合併する先天奇形は、泌尿生殖器が最多（5%）で片身肥大（2.5%）と無虹彩症（1%）が続く。泌尿生殖器の奇形ではcryptorchidismと尿道下裂が腎芽腫を合併する頻度が高い。腫瘍は大きい傾向にあり、偽被膜あるいは圧排された正常腎組織に囲まれている。腫瘍内には出血巣、壊死巣や嚢胞形成を伴うことが多い。腫瘍の下大静脈あるいは右心房への進展は約4%の頻度で認められる。腎芽腫の転移は腎門部あるいは大動脈周囲のリンパ節および血行性に肺へ転移する。治療は腎切除および術後の化学療法が主体である。組織学的には、腎芽腫の90%が予後良好のいわゆるfavorable histologyである。下大静脈あるいは右心房へ進展した症例では化学療法が先行される。

腎芽腫の画像所見としては、腹部単純写真で側腹部の軟部腫瘍や腫瘤にともなう腸腰筋陰影

の消失と消化管ガスの圧排を認める。腫瘍に一致した石灰化は約9%の頻度である。排泄性尿路造影は、所見の特異性が低く現在は造影CTで代用されている。

USでは、境界明瞭で不均一な腫瘍を認め、壊死、石灰化や脂肪成分の存在による、正常腎との境界には高エコー帯（偽被膜）あるいは低エコー帯（圧排された正常腎組織）を認める。USでは、腎静脈および下大静脈への腫瘍塞栓の評価が可能で、特にカラードプラーが役立つ。

CTは腫瘍の拡がりの評価に有用で、リンパ節や肝への転移の評価ではUSより正確に評価できる。腫瘍は境界明瞭で内部は不均一である。造影CTでは腫瘍の造影効果は正常腎組織の造影効果より弱い（Fig.6）。CTでは局所のリンパ節腫大と腫瘍浸潤によるリンパ節腫大の鑑別は不可能である。造影CTにより腫瘍の腎静脈および下大静脈への進展を評価可能であるが、診断能はUSよりやや劣る。

MRIではCT同様腫瘍の存在部位を評価できる。一般的に、T1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号と非特異的で、造影MRIでは不均

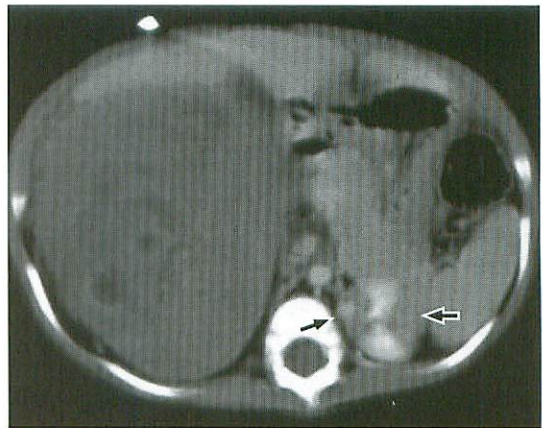


Fig.6 Wilms tumor

A 3-year-old boy presented with abdominal mass. Contrast-enhanced CT of the abdomen reveals a large mass with heterogeneous density in the region of the right kidney. Diagnosis of Wilms tumor was suggested and was confirmed by pathological analysis. Several low density foci are recognized in the left kidney suggesting focal nephroblastomatosis (arrows).

一に造影され境界をより正確に評価できる。リンパ節腫大が腫瘍浸潤によるか反応性かは鑑別困難である。MRIでは肝転移や下大静脈浸潤を正確に評価可能である。

腎芽腫症 (Nephroblastomatosis^{1~3, 9)})

Nephrogenic restとは、腎芽腫への誘導発癌能を保持した細胞群を含む異常遺残腎芽細胞の巣状結節が出生後も存在するもので、これが多発性あるいはびまん性に存在するのがnephroblastomatosisである。Nephroblastomatosisは、片側性の腎芽腫においては約40%、両側性の腎芽腫では90%以上(同時性の両側腎芽腫ではほぼ100%)に認められる。Nephrogenic restは腎内での存在部位と存在様式でperilobar, intralobar, あるいはmixedに分類される。さらにnephrogenic restの分布から, unifocal, multifocal, あるいはdiffuseに分類される。組織学的にはnephrogenic restは腎芽腫と同一である。

Nephroblastomatosisの画像診断としては、まずUSが行われることが多いが、特異的な所見に乏しい。Focal nephroblastomatosisは、USで限局した低エコー域を示し、造影CTでは限局性低吸収域を示す (Fig.6)。Diffuse nephroblastomatosisは、USでは、腎全体が腫大し、皮髄境界不明瞭でびまん性に低エコーを示し、造影CTでは腎全体の腫大に加え腎盂腎杯の圧排を認める。MRIでは、いずれの場合でも、全ての撮像条件で正常腎より低信号を示し、造影剤を投与しても造影されない(腎芽腫は不均一に造影されるため鑑別に役立つ可能性あり)。

Nephroblastomatosisは手術時に認識困難であるため、画像診断が極めて重要である。Nephroblastomatosisを認めた場合は厳重な経過観察とし、増大傾向があれば切除されることになる。

先天性中胚葉性腎腫 (Congenital mesoblastic nephroma)^{1~3, 9)}

CMNは、新生児期にみられる腎の充実性腫瘍としては最多で、小児腎腫瘍の3%である。CMNは無痛性の腹部腫瘍として気づかれ、その平均年齢は生後3ヵ月である。CMNは男女比が2対1で男児に多い。通常、腫瘍は大きく

(8~30cm)、正常腎のほとんどを占拠する場合もある。腫瘍は局所では浸潤性で、境界は不明瞭で被膜を欠く。組織学的には腫瘍は良性の結合組織および紡錘状の細胞からなり、その間に正常のネフロンが存在する。また、腫瘍内には出血、嚢胞形成、あるいは壊死巣を認める。一般的には腎門部血管や腎盂への腫瘍浸潤はないが、被膜を越える場合がある。

画像所見は上記の病理学的変化を反映したものとなる。胎児期に指摘される場合もあり、胎児USあるいはMRIで充実性の腎腫瘍を認める。出生後、腹部単純写真では通常大きい腫瘍による圧排所見を呈する。US、CTおよびMRIでは腫瘍は様々なパターンを示す (Fig.7)。造影剤の投与により造影効果を認めるのは腫瘍内に存在するネフロンに造影剤が排泄される場合と腫瘍内の血流増加による場合がある。

CMNに対する治療は、腫瘍を含む腎および周囲への腫瘍浸潤の完全摘出が基本で、通常は術後の化学療法は必要ない。

腎横紋筋肉腫様腫瘍 (Rhabdoid tumor of the kidney : RTK)^{1~3, 9, 11)}

RTKは小児期の悪性腎腫瘍の中で悪性度が最も高く、その頻度は小児腎腫瘍の2~3%である。RTKの発症年齢は、ほとんどが1歳以下で、やや男児に多い。RTKは、腎芽腫と異なり腎の中心部から発生し腎門部に進展し、診断時に大きい場合が多く(9cm以上)、腎実質全体におよんでいる。高頻度に腎静脈へ浸潤する。RTKの肺や肝への転移は腎芽腫と同様の頻度であるが、中枢神経系および骨格系への転移の報告がある。原発性の中枢神経系腫瘍を合併する場合は後頭蓋窩由来が多く、髄芽腫かPNET (primitive neuroectodermal tumor) である。

RTKの画像所見は腎芽腫に類似し、鑑別困難な場合が多い。しかし、CTで見られる被膜下の液体貯留、腫瘍内の出血や壊死による低吸収域、および腫瘍周囲の石灰化はRTKを示唆する所見である。また、腫瘍は腎の中心部に発生し腎門部へ進展することが特徴である (Fig.8)。

明細胞肉腫 (Clear cell sarcoma of the kidney : CCSK)^{1~3, 9, 11)}

CCSKはこれまで、極めて悪性な腎芽腫とされていたが、現在は組織学的にも臨床的にも独立した疾患と考えられている。CCSKは小児の腎腫瘍の約4%の頻度である。発症年齢のピークは腎芽腫と同様3~5歳で、男児に多い。腫瘍は隣接する正常腎組織に浸潤性に発育する傾向がある。CCSKは骨転移をする傾向があり、その頻度は70%以上で、この点が腎芽腫と異なる。CCSKに対する治療は腫瘍の切除と化学療法が主体である。

CCSKと腎芽腫を画像所見から鑑別することは不可能である。これらの2疾患ともにUS、

CTおよびMRIでは腎由来の不均一な腫瘍として認められる。腫瘍は造影剤の投与により造影効果を示し(Fig.9c)、内部に嚢胞状の壊死巣を認める。CCSKに高頻度に見られる骨転移は溶骨性(Fig.9a)あるいは造骨性で、骨シンチでは核種の集積像(Fig.9b)あるいは集積低下として認められる。

腎細胞癌(Renal cell carcinoma : RCC)^{2,3,9,12)}

腎細胞癌は、通常成人に見られる腫瘍であるが、5歳以上の小児でも遭遇する場合があります。性差はない(全体の0.3~1.3%が小児期にみられる)。腎細胞癌は小児の腎腫瘍のうちの2.3~6.6%と少ない。腎細胞癌は尿管上皮から発生すると考えられ、組織学的には成人に見られ

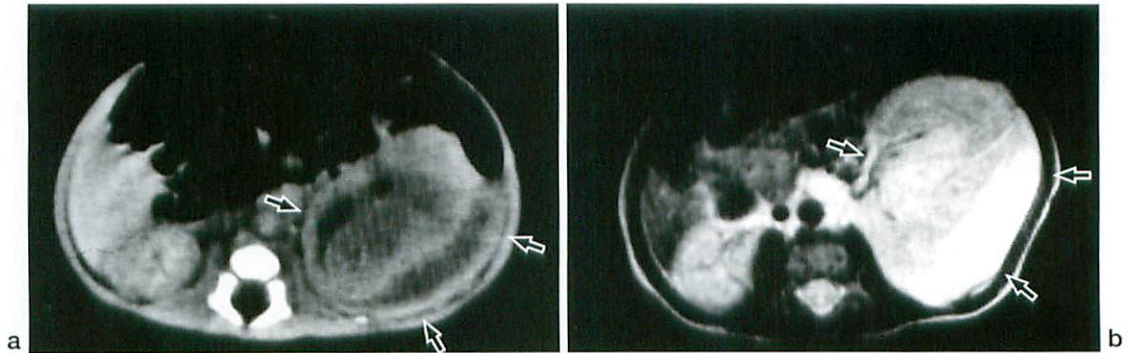


Fig.7 Congenital mesoblastic nephroma (CMN)

A 1-day-old boy with a history of an enlarged left kidney found on prenatal ultrasound and prenatal MRI (not shown). Postnatal unenhanced abdominal CT (not shown) reveals enlargement of the left kidney. Contrast-enhanced CT of the abdomen (a) shows heterogeneous enhancement of the left kidney (arrows). Postnatal axial T2-weighted MR image (b) demonstrates increased signal of the left kidney compared with the right kidney (arrows). Combining imaging findings and age of the patient, a preoperative diagnosis of congenital mesoblastic nephroma (CMN) was made. The diagnosis of CMN was confirmed by pathological analysis. (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

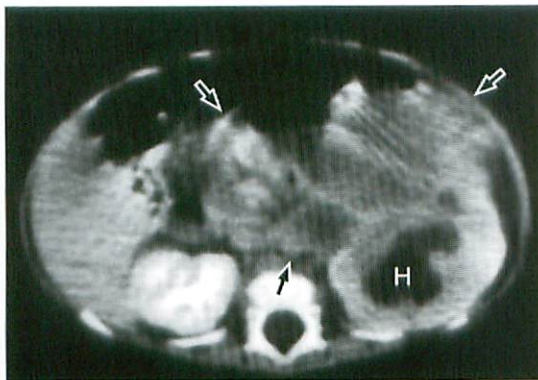


Fig.8 Rhabdoid tumor of the kidney (RTK)

A 7-month-old boy presented with an abdominal mass. Abdominal ultrasound (not shown) revealed a mass lesion arising from the left kidney associated with hydronephrosis. Contrast-enhanced CT shows a mass arising from the medial aspect of left kidney (arrows). Left hydronephrosis is demonstrated (H). Patient was operated upon with a preoperative diagnosis of Wilms tumor. Pathological diagnosis was rhabdoid tumor of the kidney. (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

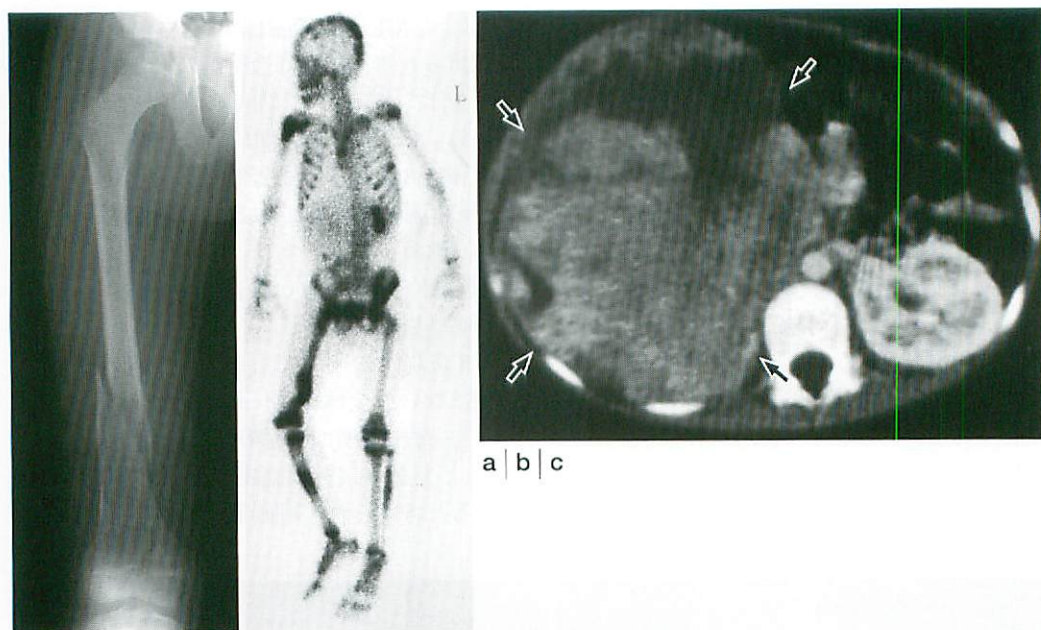


Fig.9 Clear cell sarcoma of the kidney (CCSK)

A 7-year-old boy presented with gait disturbance after minor trauma. A plain radiograph of the right femur (a) demonstrates not only spiral fracture of the distal femoral shaft but also an ill-defined radio-lucent area of the femur distal to the fracture. Diagnosis of pathological fracture of the femur was made. Anterior view of whole body bone scan (b) reveals multifocal accumulation of radiotracer in the skeletal system. Note the decreased accumulation of the radiotracer corresponding to the right kidney. Contrast-enhanced CT of the abdomen (c) demonstrates a large mass in the right kidney with heterogeneous enhancement (arrows). At surgery, right kidney was almost totally replaced by tumor. Pathological diagnosis was CCSK. (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

る腎細胞癌と同じである。腎細胞癌の臨床症状は、腫瘍触知が60%と多く、血尿は30%である。腫瘍は隣接するリンパ節に転移し、進展は後腹膜を連続性に進展する。肺、肝、中枢神経あるいは骨格系への転移は診断時に20%の症例にみられる。

US、CTおよびMRIでは腎内の非特異的な充実性腫瘍として認められる (Fig.10)。腎細胞癌では石灰化の頻度が25%で、腎芽腫の5~15%より高頻度である (Fig.10b)。腎細胞癌で見られる石灰化はリング状の場合もある。しかし、画像所見のみから腎細胞癌と腎芽腫を鑑別することは困難である。

悪性リンパ腫および白血病の腎病変 (Renal involvement of lymphoma and leukemia)^{3, 9)}

悪性リンパ腫の腎浸潤は、特に、進行した非

ホジキンリンパ腫で認める場合がある。通常両側腎の多発結節が典型的であるが、びまん性の浸潤もみられる。患児は、腎不全を呈する場合がある。腎不全は化学療法に起因する可能性もある。びまん性の腎浸潤はUSでは、エコー輝度の低下を来とし、両側性の結節も低あるいは無エコーを示す。造影CTでは、病変部は正常実質部分より造影効果が弱い。後腹膜リンパ節腫大の存在は必発である。

白血病の腎浸潤は、両側性のびまん性腫大を示し (Fig.11)、初診時あるいは緩解期に認められる。しかし、高血圧や腎不全を示すことはまれである。USおよびCTでは腎は腫大し、腎杯は圧排され (Fig.11)、実質のエコーおよび濃度は異常を呈する。

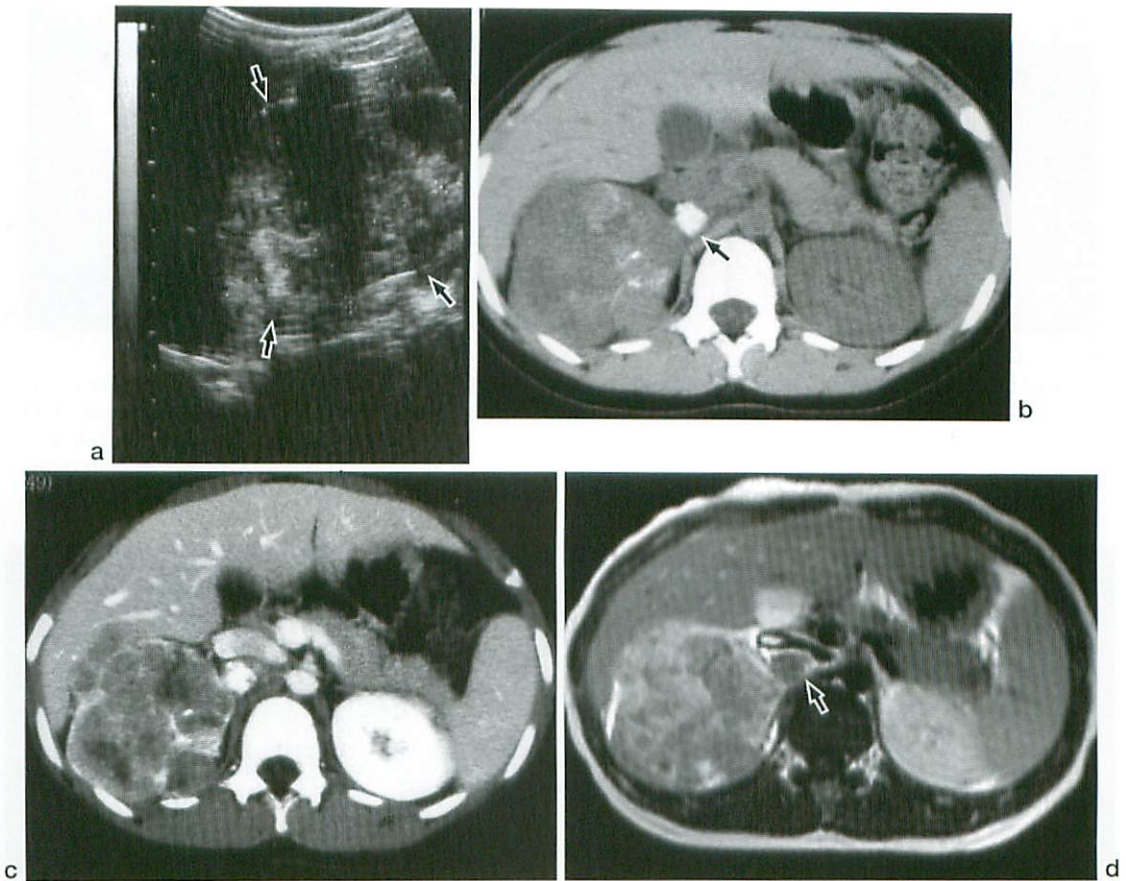


Fig.10 Renal cell carcinoma (RCC)

A 9-year-old girl presented with macrohematuria and abdominal pain.

A longitudinal view of the abdominal ultrasound (a) reveals a mass with heterogeneous internal echo in the upper pole of the right kidney (arrows). Noncontrast CT of the abdomen (b) shows enlargement of the right kidney in association with faint calcification in the enlarged kidney. A calcified paracaval node is also noted (arrow). Contrast-enhanced CT of the abdomen (c) demonstrates heterogeneous enhancement of the mass. Contrast-enhanced axial T-1 weighted MRI (d) reveals heterogeneous enhancement of the mass. The enlarged paracaval node is well demonstrated (arrow).

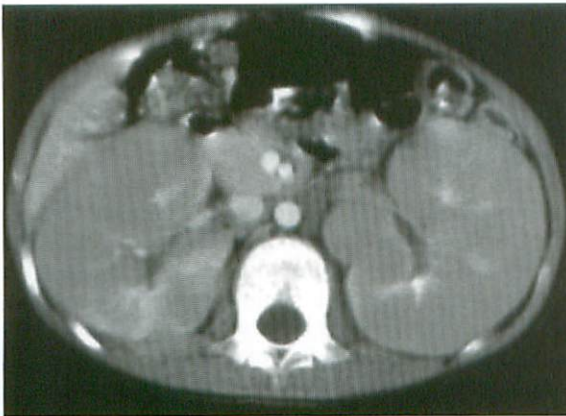


Fig.11 Leukemic infiltration of the kidney

A 5-year-old boy underwent abdominal CT for the initial evaluation of acute lymphocytic leukemia. Contrast-enhanced CT of the abdomen reveals diffuse enlargement of both kidneys with heterogeneous parenchymal enhancement.

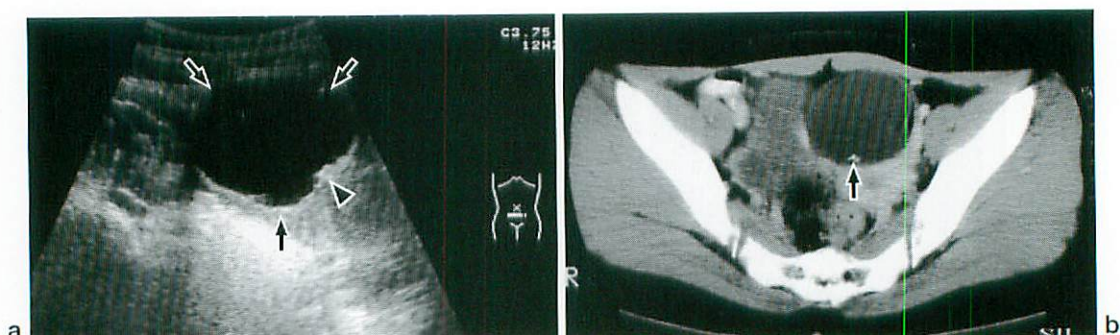


Fig.12 Dermoid cyst of the ovary

An 11-year-old girl with lower abdominal pain. A transverse view of US of the lower abdomen (a) demonstrates a well defined cystic mass (arrows) with echogenic focus (arrowhead). Subsequent CT (b) reveals a well defined cystic mass containing a focus of fat density structure as well as a small focus of calcification (arrow). (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

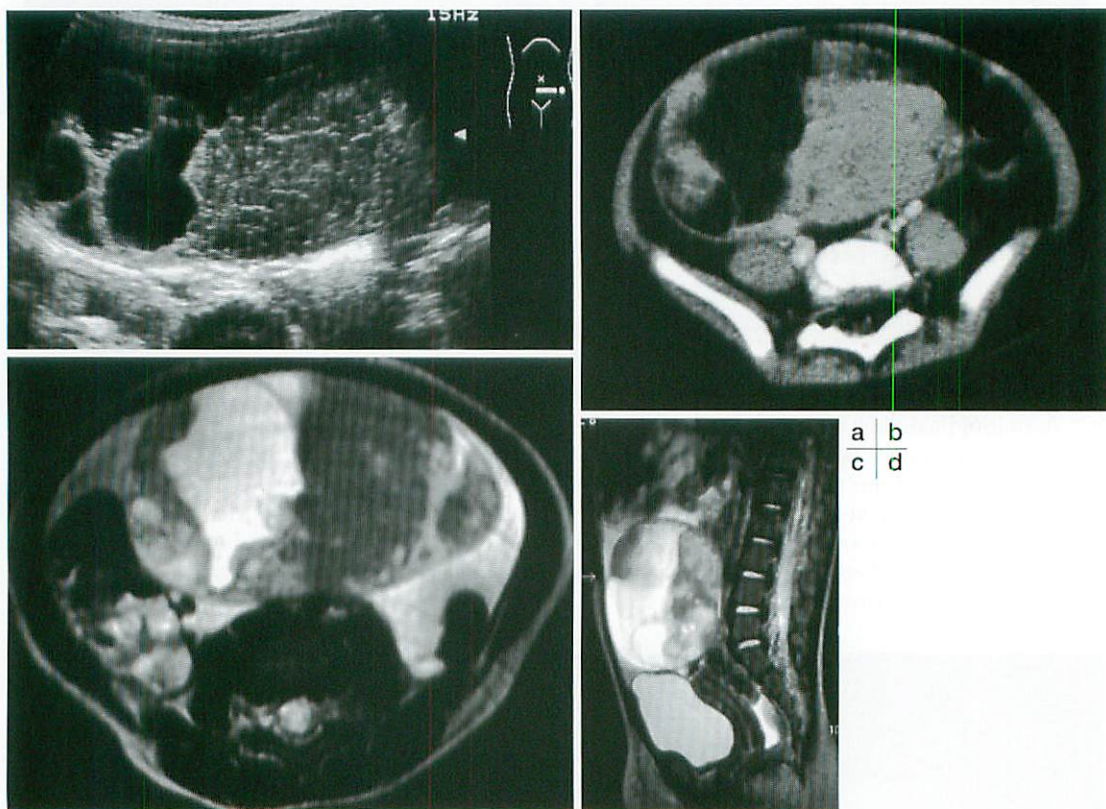


Fig.13 Granulosa cell tumor of the ovary

An 18-month-old girl presented with genital bleeding and abdominal distention. Abdominal US (a) and contrast-enhanced CT (b) reveal a large mass with both solid and cystic components in the mid and lower abdomen. An axial T2-weighted MR image (c) reveals a large mass with heterogeneous intensity. Configuration of the mass seen on MRI is similar to that of contrast-enhanced CT. A sagittal T2-weighted MR image (d) demonstrates a large well defined mass with heterogeneous intensity. The configuration of the uterine body shows that of an adult. (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

卵巣

卵巣腫瘍 (Ovarian tumor)^{2, 3, 13)}

小児領域の卵巣腫瘍はその65～80%が良性である。良性腫瘍で最も頻度が高いのは胚細胞由来の類皮嚢胞腫(**Fig.12**)である。嚢胞腺腫の頻度はむしろ少ない。卵巣悪性腫瘍は小児悪性腫瘍の1～2%である。卵巣悪性腫瘍は胚細胞由来が60～90%、間質由来(Sertoli-Leydig腫瘍、顆粒膜細胞腫(**Fig.13**)および未分化腫瘍)が10～12%、上皮性の癌が5～10%である。悪性の胚細胞腫瘍は頻度の高い順に、未分化胚細胞腫、未分化(**Fig.14**)または悪性奇形腫、卵黄嚢腫瘍(endodermal sinus tumor)、胎児性癌、および絨毛癌である。

思春期の卵巣腫瘍は、通常無症候性の骨盤内

あるいは腹部腫瘍として発見される。顆粒膜細胞腫は性早熟で、Sertoli-Leydig腫瘍は男化徴候で発見される。AFP(α -fetoprotein)は卵黄嚢腫瘍で上昇し、hCGは胎児性癌で上昇する。

卵巣の腫瘍性病変が疑われた場合は、簡便かつ多断面での評価が可能なUSが行われる。USでは腫瘍内容の評価が可能である。USで悪性を疑う所見は、充実部分が主体であること、中心部壊死、厚い隔壁、乳頭状成分の存在などである。CTおよびMRIは腫瘍の性状およびその拡がりを評価できる点でUSを凌ぐ。通常、腫瘍の局所の進展の評価はCTで十分であるが、CT所見が明確でない場合はMRIが役立つ。腫瘍内の出血成分や脂肪成分はMRIで容易に認識できる。

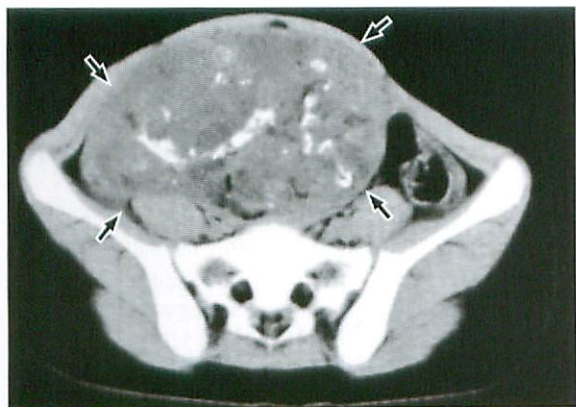


Fig.14 Immature teratoma of the ovary

A 9-year-old girl presented with a lower abdominal mass. Contrast-enhanced CT of the lower abdomen demonstrates a large mass lesion (arrows) in the lower abdomen containing soft tissue component, calcification and fat density structure. (Courtesy of Yasuo Nakajima, MD, Department of Radiology, St. Marianna University School of Medicine)

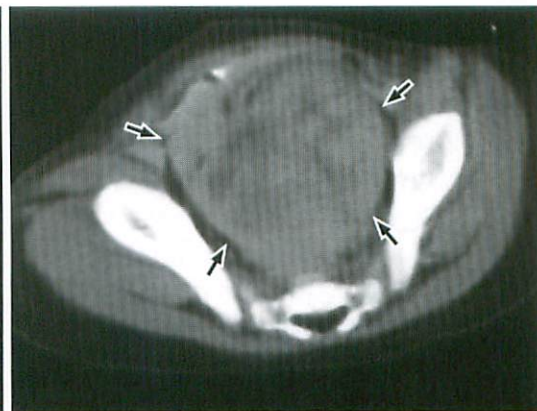
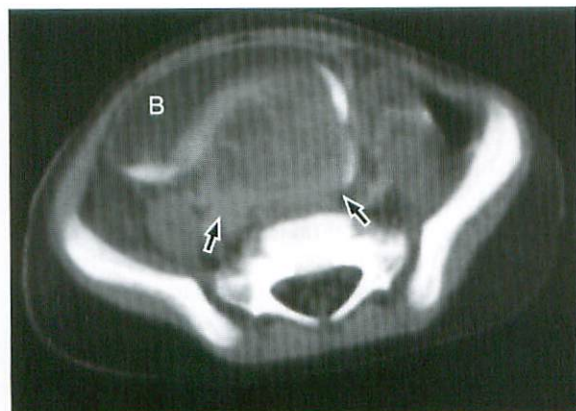


Fig.15 Prostatic rhabdomyosarcoma

A 3-year-old boy presented with abdominal pain and incontinence. Abdominal US (not shown) demonstrated a mass in the presacral region. Contrast-enhanced CT images of the lower abdomen (a, b) reveal a mass with heterogeneous attenuation in the pelvic cavity (arrows). Note the anterior displacement of the bladder (B).

a | b

その他

横紋筋肉腫 (Rhabdomyosarcoma)³⁾

横紋筋肉腫は、小児領域の軟部組織肉腫の中で最も頻度が高い。横紋筋肉腫は、小児領域で見られる、中枢神経を除いたあらゆる臓器・組織から発生する唯一の腫瘍である。横紋筋肉腫は小児の全充実性腫瘍のうち、約10%の頻度で、通常極めて悪性で、局所浸潤、早期再発、血行性あるいはリンパ行性転移を認める。横紋筋肉腫は性差なく、2～6歳あるいは14～18歳に多く見られる。

横紋筋肉腫は病理学的に、embryonal type, alveolar type, embryonal-botryoid type, pleomorphic type, undifferentiated typeに分類される。小児では、embryonal typeの頻度が高く、この型は最も予後がよい。同一腫瘍内に様々な組織型が混在することもある。

小児領域の横紋筋肉腫の発生部位は、骨盤および泌尿生殖器が約40%、頭頸部が約30%である。泌尿生殖器のなかには、上下部尿路、前立腺、精索、精巣、精巣上体、陰茎、陰、子宮、骨盤底、および会陰が含まれる。初発症状は腫瘍の発生部位により異なる。尿路系では腫瘍の存在部位に応じた閉塞症状や血尿が主たる症状となる。前立腺原発の場合は排尿障害、尿閉あるいは隣接臓器である直腸や下部尿管の閉塞症状を呈する。陰原発では、帯下、出血、陰内腫瘍あるいは腫瘍の陰外への脱出を認める。

画像診断所見は、腫瘍の発生部位に応じて異なる。尿路系の横紋筋肉腫は腎臓から外性器まであらゆる部位に出現するが、膀胱原発が最も多く、膀胱三角部あるいは膀胱頸部に認められる。膀胱原発の横紋筋肉腫に対する画像診断としては、まずUSが行われるが、腫瘍の進展範囲の正確な評価にはCTまたはMRIが行われる。これらの断層画像診断および排泄性膀胱尿道造影(VCUG)では、膀胱内の分葉状腫瘍および様々な程度の膀胱壁肥厚を認める。膀胱の病変については、男児では前立腺原発の腫瘍と、女児では陰原発の腫瘍と鑑別困難な場合がある。前立腺原発の横紋筋肉腫は、US、CTあるいは

MRIで膀胱を外方から圧排・変位させる所見を認める(Fig.15)が、膀胱内腔に浸潤する場合もある。陰原発の横紋筋肉腫は女児の外陰部腫瘍では最多である。通常、腫瘍は陰上部1/3の前壁から発生し、陰内腔に発育するとともに、膀胱あるいは子宮頸部に進展する。これらの所見は、CTあるいはMRIで描出される。

●文献

- 1) Wootton SL: The child with an abdominal mass. Practical pediatric radiology (1 ed), Ed by Hilton SvW and Edwards DK. Philadelphia, W.B. Saunders Company, 1994, p357-388.
- 2) 野坂俊介: 腹部腫瘍。すぐわかる小児の画像診断(第1版), 荒木 力, 原 裕子編, 東京, 秀潤社, 2001, p276-305.
- 3) Barnewolt CE, Paltiel HJ, Lebowitz RL, et al: Genitourinary tract. Practical Pediatric Imaging (3 ed). Ed by Kirks DR. Philadelphia, Lippincott-Raven Publishers, 1998, p1009-1170.
- 4) 正木英一: 神経芽腫における¹²³I MIBGシンチグラフィの有用性。日本小児放射線学会雑誌 1995; 11: 22-33.
- 5) Abramson SJ: Adrenal neoplasm in children. Radiol Clin North Am 1997; 35: 1415-1453.
- 6) Yamamoto K, Hanada R, Tanimura M, et al: Natural history of neuroblastoma found by mass screening. Lancet 1999; 349: 1102.
- 7) 石本浩市, 菊地正悟: 神経芽腫マス・スクリーニングの問題点。小児科診療 1999; 62: 1199-1203.
- 8) Nishihira H, Toyoda Y, Tanaka Y, et al: Natural course of neuroblastoma detected by mass screening: a 5-year prospective study at a single institution. J Clin Oncol 2000; 18: 3012-3017.
- 9) Geller E, Smorgel EM, Lowry PA: Renal neoplasms of childhood. Radiol Clin North Am 1997; 35: 1391-1413.
- 10) Taybi H: Syndrome. Handbook of syndromes and metabolic disorders (1 ed), Ed by Taybi H. St. Louis, Mosby-Year Book, Inc., 1998, p.1-231.
- 11) 生駒憲昭, 岩崎善衛, 野坂俊介, 他: まれな小児腎腫瘍。臨放 1989; 34: 219-225.
- 12) Chan HSL, Daneman A, Gribbin M, et al: Renal cell carcinoma in the first two decades of life. Pediatr Radiol 1983; 13: 324-328.
- 13) Siegel MJ: Pelvic tumors in childhood. Radiol Clin North Am 1997; 35: 1455-1475.

原著論文

MRAを用いたImpalpable testisの部位診断法

佐藤嘉治, 吉田英生, 松永正訓, 幸地克憲, 大塚恭寛, 菱木知郎,
照井慶太, 光永哲也, 大沼直躬

千葉大学医学部 小児外科

Evaluation of Impalpable Testis with MRA Imaging

Yoshiharu Satoh, Hideo Yoshida, Tadashi Matsunaga, Katsunori Kouchi,
Yasuhiro Ohtsuka, Tomoroh Hishiki, Keita Terui, Tetsuya Mitsunaga, Naomi Ohnuma

Department of Pediatric Surgery, School of Medicine, Chiba University

Abstract Cryptorchidism is a common childhood condition. Approximately 20% of undescended testes are impalpable. Preoperative localization of impalpable testes is most important because different methods of treatment are required. Present methods of preoperative investigation, (ultrasound, CT, and MRI) are not successful. We tried to localize impalpable testes by MRA imaging of the plexus pampiniformis in the current study. MRA could detect atrophic and canalicular testes near the internal inguinal ring which were not detected by MRI. If the plexus pampiniformis is not detected, we must suspect absence of testis or intra-abdominal testis and examine by laparoscopy.

Keywords MRA, Impalpable testis, Undescended testis

はじめに

小児外科領域において、停留精巣は比較적으로よく遭遇する疾患である。外来診療の中で殆どの停留精巣が精巣を鼠径管内に触知することが出来るが、丁寧な触診を行っても精巣を触知出来ないimpalpable testisをしばしば経験する。このimpalpable testisの頻度は約20%¹⁾といわれている。治療に関しては腹腔内精巣や鼠径管高位の停留精巣では二期的手術を行うことがあり、術式を選択する上で精巣の部位を知ることは重要と思われる。当科では丁寧な触診や超音波検

査ではわからないimpalpable testisの部位診断法としてMRI検査を施行してきたが、高度に萎縮した精巣や腹腔内精巣では描出が難しかった。そこで、我々は通常のMRIでは描出できなかったimpalpable testisに対してMRAを用いて、部位診断の有用性を検討したので報告する。

対象と方法

期間：1999年2月～2000年2月

症例：通常のMRIで冠状・水平断を撮像し精巣を同定できなかったimpalpable testis 4例

装置：GE社製, Signa 1.5 T

原稿受付日：2001年8月18日, 最終受付日：2001年10月9日

別刷請求先：〒260-8677 千葉市中央区亥鼻1-8-1 千葉大学医学部 小児外科 佐藤嘉治

撮像法：3D fast SPGR

撮影条件：TE/TR 6.3/1.5, flip angle 30°, slice厚 4.0mm, gap 2mm

造影剤：Gadolinium-DTPA-BMA (オムニスキャン®)

注入法：0.3mmol/kgを1.5ml/secの速度で経静脈投与

撮像時期：注入開始後10～20秒後より撮像開始し、1 phase 20～30秒で2 phaseを息止め無しで冠状断を撮像した。

鎮静方法：検査30分前にエスクレ座薬® (一般名：抱水クロラル) を30～50mg/kgを経直腸投与し、検査直前にミダゾラム0.2～0.3mg/kg、ケタラル 1 mg/kgを経静脈投与した。

判定方法：蔓状静脈叢と精巣動脈の走行が高

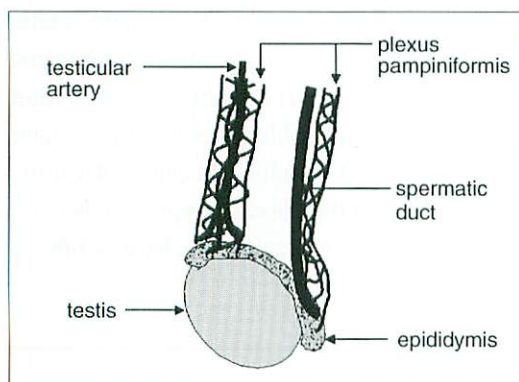


Fig.1 Lateral view of the plexus pampiniformis and testicular artery.

信号に描出されることで精巣の位置を同定した (Fig.1)。また、精巣の状態や部位については、全て鼠径部アプローチの精巣固定術又は腹腔鏡検索にて確認した。

結果

症例1：2歳，両側停留精巣(左側：impalpable testis, 右側：鼠径管高位に触知)。右停留精巣は矢印の箇所にT2強調画像にて高信号に描出されていたが、左側精巣は描出されなかった (Fig.2a)。静脈相のMRAでは矢頭の箇所に蔓状静脈叢が高信号に描出されていた (Fig.2b)。以上の結果より左鼠径管内萎縮精巣の術前診断を得て、鼠径部アプローチの手術を行った。左精巣は鼠径管高位に位置し高度に萎縮しており、MRA所見と一致した。

症例2：1歳，左側停留精巣 (impalpable testis)。矢印は正常な右精巣で、左側精巣はMRIでは描出されなかった (Fig.3a)。

静脈相のMRAでは、正常な右精巣の蔓状静脈叢は描出されていたが、左側は描出されなかった (Fig.3b)。術前診断は左精巣無形成又は腹腔内精巣であったため腹腔鏡検索を行った。左側の精管は後腹膜に変位し血管は内鼠径輪付近で途絶しており、左精巣無形成の診断を得た。

症例3：1歳，左側停留精巣 (impalpable testis)。矢印は正常な右精巣で、左側は矢頭の

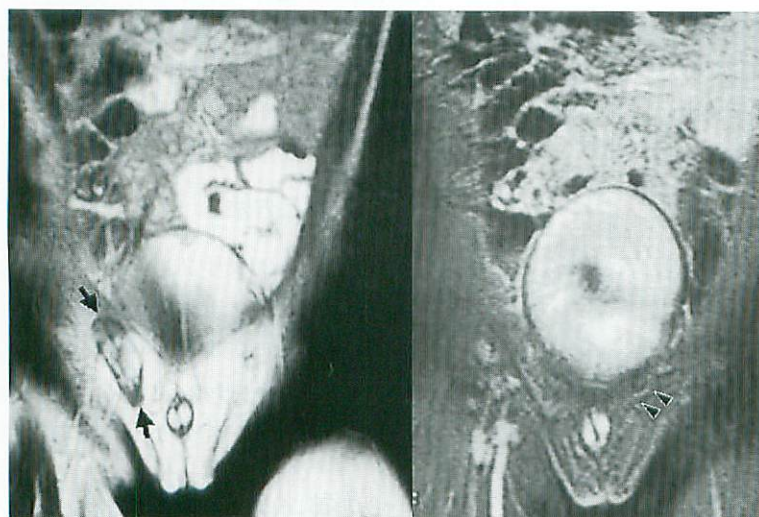
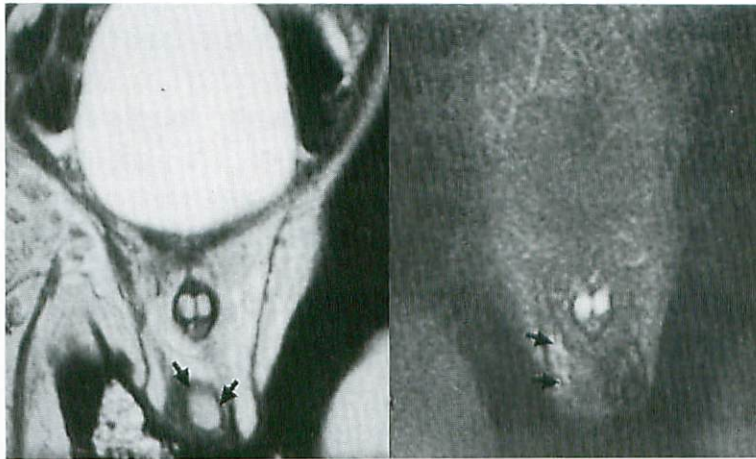


Fig.2 A 2-year-old boy with left impalpable testis and right palpable undescended testis

- a : Coronal T2 weighted image shows right undescended testis (arrows).
b : MRA (coronal image) shows left plexus pampiniformis (arrowheads).

箇所に精巣様構造物を認めたが、近傍の点線で示した矢印にも同様の構造物を認め (Fig.4a) リンパ節との区別のためMRAを行った。静脈相のMRAでは矢印の箇所に正常な右精巣の蔓状

静脈叢が描出され、矢頭の箇所に左の蔓状静脈叢が描出された。点線で示した矢印の箇所は血管の描出はなくリンパ節と判断した (Fig.4b)。以上の結果より左鼠径管内萎縮精巣の術前診断

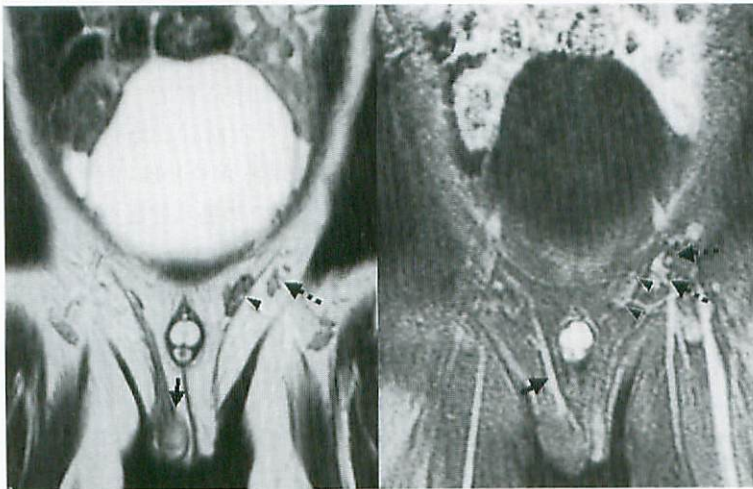


a | b

Fig.3 A 1-year-old boy with left impalpable testis

a: Coronal T2 weighted image shows right normal testis (arrows).

b: MRA (coronal image) shows the right plexus pampiniformis (arrows) and does not show the left.



a | b

Fig.4 A 1-year-old boy with left impalpable testis

a: Coronal T2 weighted image shows right normal testis (arrow) and two images like the left testis (arrowhead and dotted arrow).

b: MRA (coronal image) shows right (arrow) and left (arrowheads) plexus pampiniformis, and a lymphatic node (dotted arrows).



a | b

Fig.5 A 1-year-old boy with left impalpable testis

a: Coronal T2 weighted image shows right normal testis (arrow).

b: MRA (coronal image) shows the right plexus pampiniformis (arrows) and does not show the left.

を得て鼠径部アプローチの手術を行った。左鼠径管高位に中等度萎縮精巣を認め、MRA所見と一致した。

症例 4: 1 歳、左側停留精巣 (impalpable testis)。矢印は正常な右精巣で、左側精巣は MRI では描出されなかった (Fig. 5a)。静脈相の MRA では、正常な右精巣の蔓状静脈叢は描出されていたが、左側は描出されなかった (Fig. 5b)。術前診断は左精巣無形成又は腹腔内精巣であったため、腹腔鏡検索を行った。左側の精管、血管とも内鼠径輪付近で途絶しており、左精巣無形成の診断を得た。

各症例の詳細を表にしてみた (Table 1)。症例 1 と 3 では、MRA 検査にて蔓状静脈叢が描出されており高度萎縮精巣に対しては除睾術、中程度萎縮精巣に対しては固定術を施行した。症例 2 と 4 では、MRA 検査では蔓状静脈叢の描出はできなかったが、腹腔鏡検索の結果、内鼠径輪付近で血管が途絶した精巣無形成であった。

また、いずれの症例も動脈相では血管系の描出は不十分であった。内鼠径輪付近に血管を確認できた精巣無形成例では蔓状静脈叢を描出できなかった。

考 察

Impalpable testis に対する超音波、CT、MRI 検査などの正診率は高くても約 70%²⁾ であり、正診率の良い MRI 検査でも鼠径管高位の停留精巣や極度に萎縮した精巣に対しては 50%³⁾ と低

い。impalpable testis の部位を Moore らの分類 (Fig. 6)⁴⁾ を用いると大きく 4 つに分けられる。このうち 1-a 以外のタイプが impalpable testis の半数以上を占める^{5,6)}。しかも、手術法の選択がそれぞれ異なるため、術前の部位診断が重要となる。しかし、1-a 以外は通常の MRI で描出するのは困難だと思われる。MRI が精巣のみで部位診断をしているのに対して、MRA は精巣への血管系 (精巣動静脈、蔓状静脈叢) を描出することで部位を同定する手法を用いている。今回の結果より、MRA は通常の MRI では描出できない鼠径管内の高度萎縮精巣を同定するのに有用であった。ただし、腹腔鏡検索で精巣への血管を認めたにも関わらず精巣無形成例では、MRA でも同定は困難であった。我々の行った MRA による部位診断は精巣動脈の描出が困難なため蔓状静脈叢の描出を用いた。従って、蔓状静脈叢が未発達と推測される精巣無形成例では描出できなかったものと思われる。MRA が腹腔内精巣の同定に有用であったとする報告⁷⁾ もあるが、今回検討した症例では腹腔内精巣がないためはっきりとは言えないが、腸管との重なりがあるため蔓状静脈叢の描出は困難と思われる。

そこで、蔓状静脈叢の描出が認められない例では精巣無形成、腹腔内精巣を念頭に腹腔鏡による検索が必要と思われる。

まとめ

MRA は MRI では描出が難しい鼠径管高位や、

Table 1 The findings and the diagnosis of 4 cases

No.	The findings of MRA	preoperative diagnosis	postoperative diagnosis	procedure
1	plexus pampiniformis at high level of inguinal canal	atrophic testis at inguinal canal	same as left	castration
2	no plexus pampiniformis at inguinal canal	intra-abdominal testis or aplasia	aplasia	laparoscopic examination
3	plexus pampiniformis at high level of inguinal canal	atrophic testis at inguinal canal	same as left	orchiopexy
4	no plexus pampiniformis at inguinal canal	intra-abdominal testis or aplasia	aplasia	laparoscopic examination

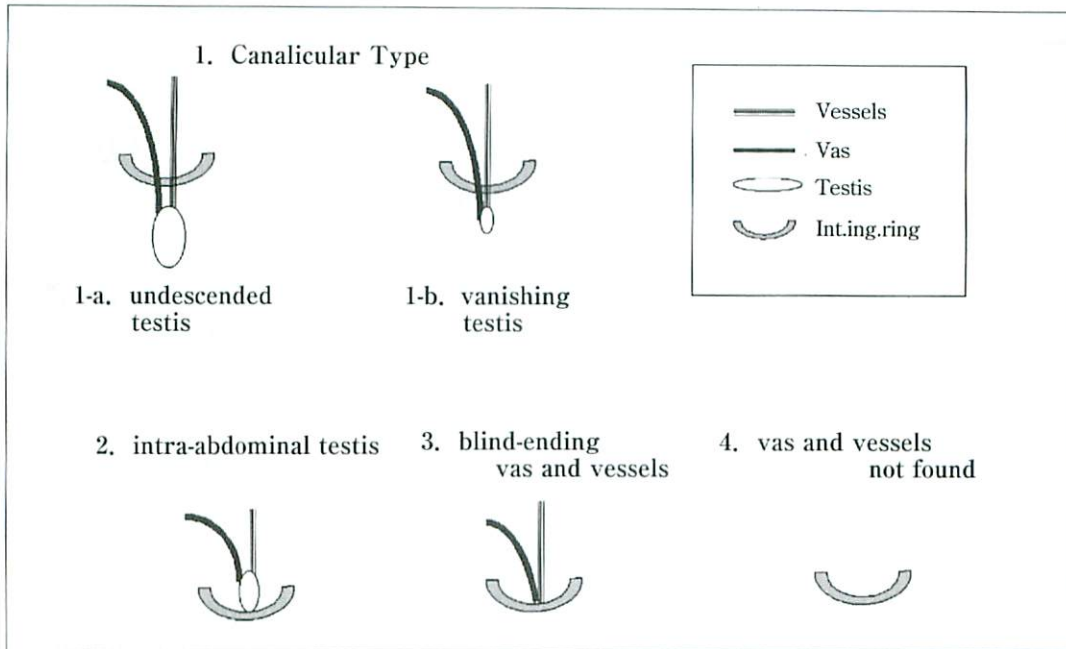


Fig.6 The classification of impalpable testis

高度に萎縮した精巣の部位診断に有用であった。ただし、蔓状静脈叢が描出されない例では精巣無形成や腹腔内精巣を疑って腹腔鏡による検索を併用することが必要と思われた。

●文献

- 1) Kier R, McCarthy S, Rosenfield AT, et al : Nonpalpable testes in young boys : Evaluation with MR imaging. Radiology 1988 ; 169 : 429-433.
- 2) 黒川泰史 : Impalpable testisの腹腔鏡診断. 小児外科1998 ; 30 : 596-600.
- 3) 窪田正幸, 水田祥代, 山中清一郎 : 停留睾丸症例におけるMRIの有用性. 小児外科 1994 ; 26 : 651-657.
- 4) Moore RG, Peters CA, Buer SB, et al : Laparoscopic evaluation of the nonpalpable testis : a prospective assessment of accuracy. J Urol 1994 ; 151 : 728-731.
- 5) Cortes D, Thorup JM, Lenz K, et al : Laparoscopy in 100 consecutive patients with 128 impalpable testes. British J Urology 1995 ; 75 : 281-287.
- 6) 寺島和光, 山崎 彰, 穂坂正彦 : Nonpalpable testis 123例の検討. 日小外会誌 1985 ; 21 : 841-843.
- 7) Wendy WM, Paul KH, Ai VH, et al : Gadolinium-Infusion Magnetic Resonance Angiogram : A New, Noninvasive, and Accurate Method of Preoperative Localization of Impalpable Undescended Testes. J Pediatr Surg 1998 ; 33 : 123-126.

症 例 報 告

バルーン拡張併用経皮経胃嚢胞ドレナージが 有用であった膵仮性嚢胞の1例

宮崎 治, 野坂俊介³⁾, 宮坂実木子³⁾, 中山睦子³⁾, 今西好正, 山内栄五郎,
川口文夫¹⁾, 新開統子¹⁾, 宮本雄策²⁾

聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院放射線科, 同小児外科¹⁾, 同小児科²⁾
聖マリアンナ医科大学放射線医学教室³⁾

Percutaneous Cystgastrostomy and Balloon Dilatation for a Pediatric Patient with Pancreatic Pseudocyst. —A case report—

Osamu Miyazaki, Shunsuke Nosaka³⁾, Mikiko Miyasaka³⁾, Mutsuko Nakayama³⁾,
Yoshimasa Imanishi, Eigoro Yamanouchi, Fumio Kawaguchi¹⁾, Touko Shinkai¹⁾,
Yuusaku Miyamoto²⁾

Dept. of Radiology, Pediatric surgery¹⁾ and Pediatrics²⁾, St. Marianna University Yokohamashi Seibu Hospital
Dept. of Radiology, St. Marianna University School of Medicine³⁾

Abstract We report a case of a 10-year-old male who underwent percutaneous cystgastrostomy and balloon dilatation for treatment of recurrent pancreatic pseudocyst. He had been suffered from epilepsy due to viral encephalitis at about two years of age.

A large pancreatic pseudocyst was found incidentally by abdominal CT performed for evaluation of liver dysfunction.

Percutaneous cystgastrostomy was carried out under endoscopic and CT guidance because the size of pseudocyst seemed to be enlarged on follow-up CT. Connection between pseudocyst and pancreatic duct was identified by fistulography. We therefore tried to do balloon dilatation at the posterior wall of stomach but failed.

Approximately 2 months after extubation of drainage tube, recurrence of pseudocyst was diagnosed by follow-up CT.

Percutaneous cystgastrostomy was repeated. Firstly, balloon dilatation of posterior wall of stomach which failed in the initial trial, was done before the placement of the drainage catheter. Then, additional balloon dilatation was carried out two weeks after the procedure. There has been no recurrence of pseudocyst since removal of the drainage tube. Here we discuss the relationship between pancreatitis and many anticonvulsant drugs. We stress that percutaneous cystgastrostomy with balloon dilatation is a useful procedure for recurrent pancreatic pseudocyst.

Keywords Pancreatic pseudocyst, Percutaneous cystgastrostomy, Children, Balloon dilatation

原稿受付日: 2001年7月10日, 最終受付日: 2001年8月24日

別刷請求先: 〒241-0811 横浜市旭区矢指町1197-1

聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院放射線科 宮崎 治

はじめに

今回我々は脳性麻痺患児に発症した肺炎後の仮性脾嚢胞に対し、バルーン拡張術を併用した経皮経胃仮性嚢胞ドレナージを施行したので報告する。

症 例

症例：10歳男児

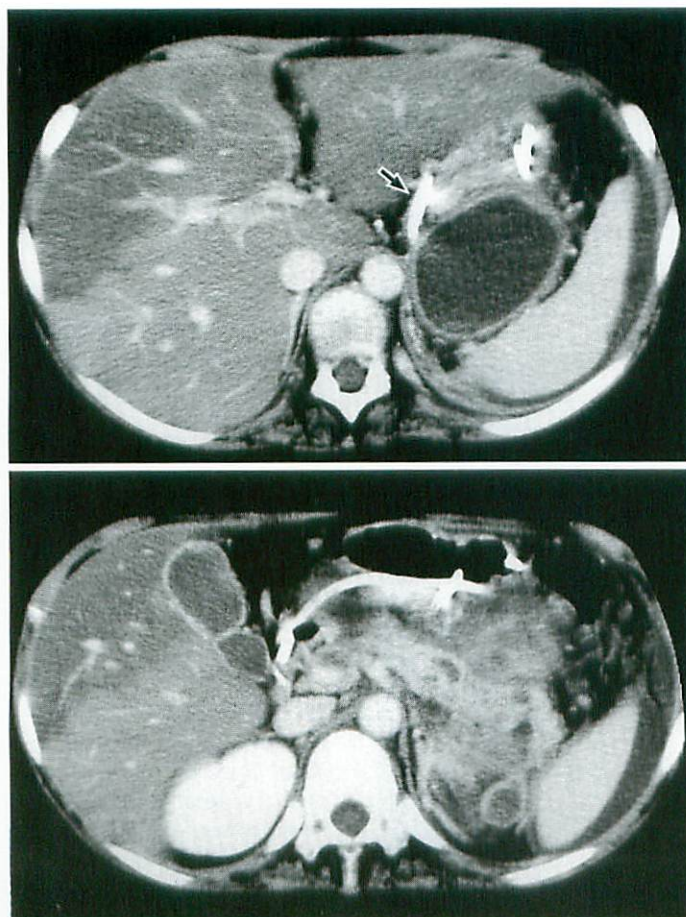
主訴：けいれん重積，肝機能異常，不明熱（37.5度前後）

既往歴：平成11年12月中旬に頭痛，発熱，けいれん重積発作があり，近医受診後に当院へ転送。けいれんの原因はウイルス性脳炎が疑われたが，脳炎の原因は明らかにできなかった。けいれんのコントロールは不良であり，症候性てんかんに移行し，当院小児科病棟に入院中で

あった。

家族歴：特記事項なし

起始経過：血液生化学データ上肝機能異常（総ビリルビン 1.2 mg/dl, AST 262 IU/l, ALT 220 IU/l, LDH 550 IU/l, ALP 1625 IU/l, γ GPT 1975 IU/L）を認めたため，定期的に腹部CTが施行され，脂肪肝あるいは薬剤性のびまん性肝障害が疑われていた。平成12年12月26日に施行されたフォローアップの腹部単純CTにて，以前にはみられなかった左上腹部の嚢胞性病変が出現し，翌年1月17日に施行された造影CT（Fig.1）では嚢胞は増大傾向を示し，脾の腫大，脾内の低吸収域，脾周囲の後腹膜脂肪組織の濃度上昇および腹水の出現を認めた。CT上急性脾炎にともなう脾仮性嚢胞の形成と診断した。血液データ上は白血球 $12,000/\mu\text{l}$ ，CRP 19.8mg/dlと炎症所見を認め，アミラーゼは346



a
b

Fig.1 Pseudocyst and acute pancreatitis diagnosed by contrast enhanced abdominal CT

- a: Note pancreatic pseudocyst as an oval shaped low density area between stomach and spleen. There is a gastrostomy tube in the stomach (arrow). Right lobe of liver shows a segmental low density area.
- b: Note the inhomogenous retroperitoneal fat density around pancreas. Also, pancreatic parenchyma shows multiple small cystic components.

IU/ℓ (正常値55~175 IU/ℓ), 膵由来アミラーゼは108 IU/ℓ (正常値22~70 IU/ℓ) と高値を示し膵炎が示唆された。また持続する不明熱は膵炎と膵仮性嚢胞の感染が原因と考えられた。CT上膵仮性嚢胞は増大し、抗生剤投与等の内科的治療後も炎症の改善は見られず、経皮的嚢胞ドレナージの適応と考えられた。

平成13年1月29日に全身麻酔下、内視鏡ガイド下、およびCTガイド下にて経皮経胃膵嚢胞ドレナージを施行した(Fig.2)。患児はすでに胃瘻が造設してあったため胃壁固定は行わず、内視鏡にて送り胃壁を腹壁に密着させ、皮膚マーカーを付けて位置決めを行い、18ゲージのPTCD針にて穿刺後、8Fr.のピグテール型ドレナ-

ジチューブ(ユレシル社製)を留置した。初回ドレナージ排液のアミラーゼは5750 IU/ℓと高値を示し、嚢胞内の高濃度の膵液貯留が疑われた。その後白血球とCRPの軽度上昇は持続したが、膵嚢胞は縮小し血液データ上アミラーゼは正常化した。同年3月5日(ドレナージチューブ留置より35日目)に瘻孔造影を施行すると、嚢胞と主膵管との交通が確認されたため、透視下に胃後壁の貫通部のバルーン拡張を試みたが、ガイドワイヤーが逸脱したためドレナージチューブを抜去した。その後経過中CTにて膵嚢胞の再発は認めなかったが、穿刺から約2ヵ月後のCT(Fig.3)にて、胃内側に13×8cm大の仮性嚢胞が再発した。このため同年5月21日

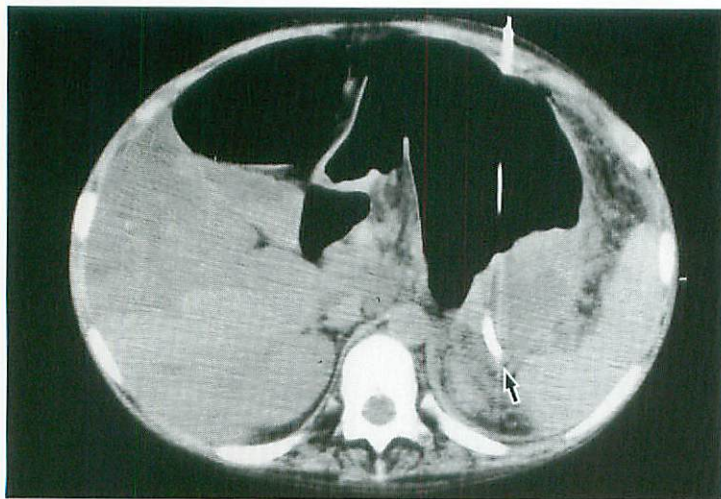


Fig.2 Percutaneous cystgastrostomy under CT guidance
8Fr. pig-tail catheter is placed.
Note tip of catheter in pseudocyst (arrow).

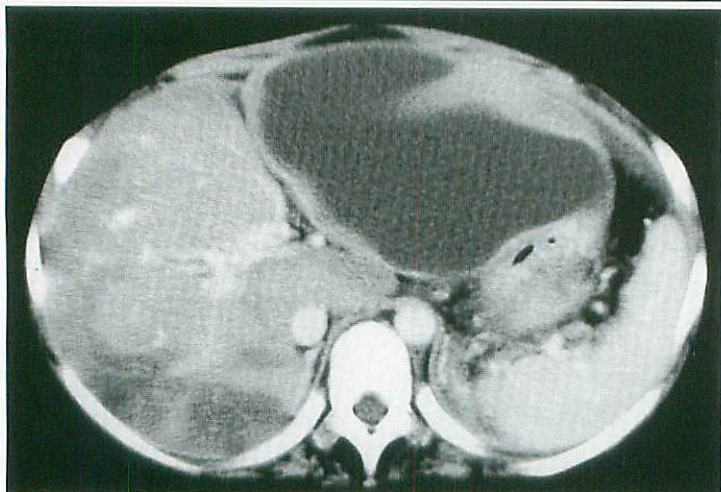


Fig.3 Recurrence of pseudocyst
Note large cystic lesion in medial side of stomach as a recurrence of pancreatic pseudocyst. It seems to be different in origin compared to initial pseudo cyst.

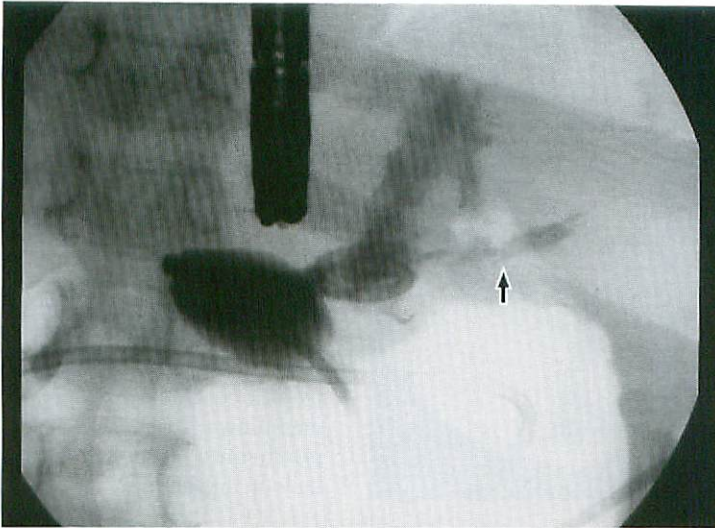


Fig.4a Fistulography

Pancreatic duct (arrow) is contrasted by fistulography. Connection between pseudocyst and pancreatic duct is established.

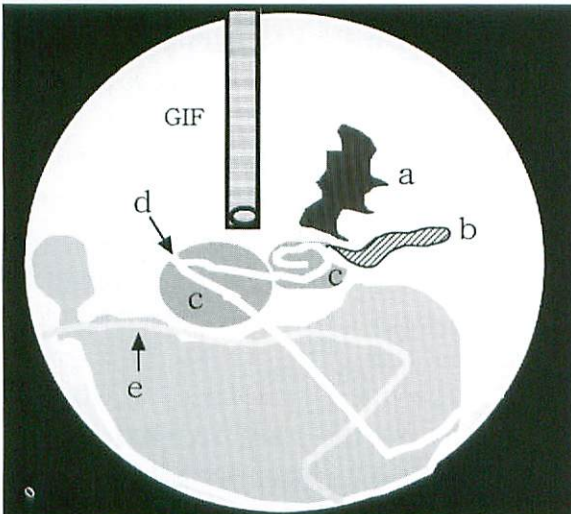


Fig.4b Diagram of fistulography

a ; contrast material in cardia of stomach, b ; a pancreatic duct, c ; pancreatic pseudocyst, d ; pig tail catheter for pseudocyst, e ; ED tube from gastrostomy

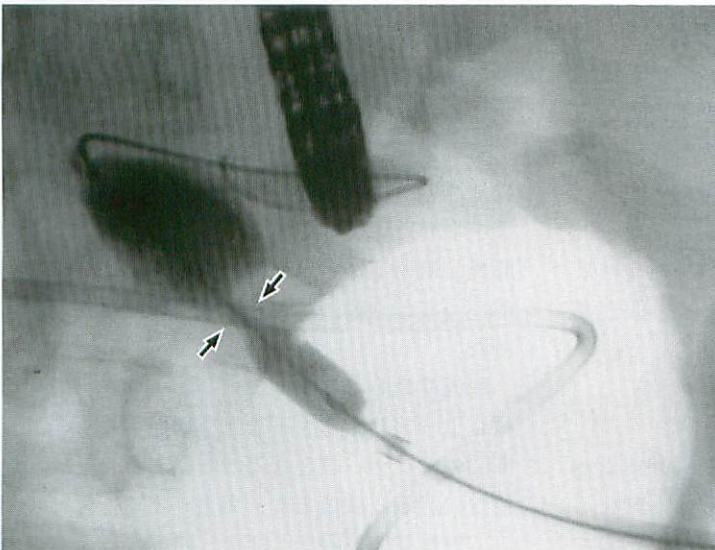


Fig.5 Balloon dilatation of transfixion

Note waist of balloon catheter (arrow) at transfixion of posterior wall of stomach before dilatation.

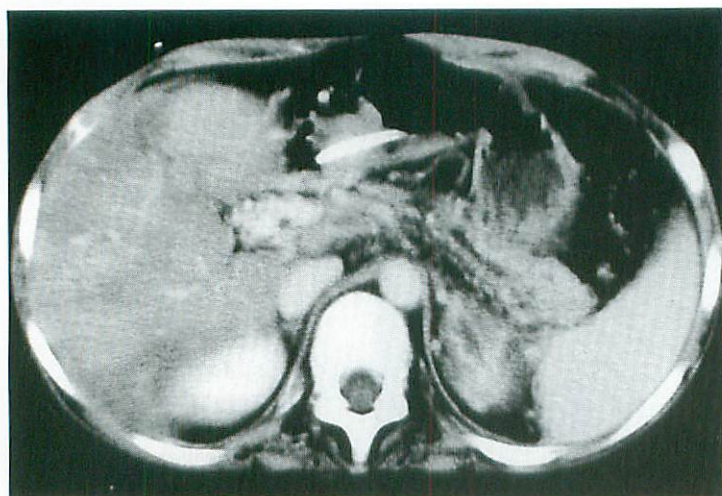


Fig.6 Disappearance of pseudocyst on follow-up CT

Previously demonstrated pseudocyst has disappeared on follow-up CT, which was performed 2 months after balloon dilatation.

に、再度全身麻酔下、内視鏡下、CTガイド下にて経皮経胃膵嚢胞ドレナージを施行した。2回目の手技は1回目にバルーン拡張術が失敗したことを踏まえ、穿刺直後のドレナージカテーテル留置に先立ちバルーン拡張術を施行した。バルーンは10mm径、4 cm長の血管拡張用バルーン(power flex plus, コーディス社製)を使用し、内視鏡にて位置を確認して10気圧、30秒2回拡張を行い、その後ピグテールカテーテルを留置した。さらにその2週間後に透視下にて嚢胞と膵管との交通を確認後(Fig.4)に前回同様のバルーン(10mm径、4 cm長、power flex plus, コーディス社製)を使用し、バルーン拡張術を追加した。バルーンのくびれが消失するように10気圧、30秒2回施行した(Fig.5)。拡張術施行後の確認の造影にて注入した造影剤の胃への良好な流出を認めた。その後3週間ドレナージチューブをクランプにて留置した後にチューブを抜去した。手技の全経過を通じ明らかな合併症の発現はみられなかった。またバルーン拡張術施行約2ヵ月後のCT(Fig.6)にて、仮性嚢胞の再発はみられなかった。

考 察

小児の急性膵炎の原因として特発性膵炎以外に外傷、感染症、先天性胆道拡張症、薬剤などによる続発性膵炎が挙げられる。膵炎を惹起す

る薬剤にはステロイド、抗癌剤、免疫抑制剤、利尿剤、抗けいれん剤などが知られている。抗けいれん剤のなかでもバルプロ酸ナトリウム投与中の膵炎の合併は多数報告されている^{1,2)}。

本例も膵炎後のてんかんに対しバルプロ酸ナトリウム投与の既往はあるが、膵炎発症の約1年前に投薬を中止されており、その関連性は低いと思われる。本例は膵炎の発症を前後して、てんかんに対してフェニトイン(アレビアチン注)、ミダゾラム(ドルミカム)を、また感染症に対し多種類かつ多量の抗生物質を使用し、さらに高カロリー輸液管理や脂肪製剤(イントラファット注)も投与されていた。フェニトインに起因する膵炎の合併は稀と思われるが過去に数例の症例報告があり³⁾、脂肪製剤による膵炎も報告されている⁴⁾。また高カロリー輸液による過栄養が脂肪肝を惹起し、血液データ上肝機能異常を認め、CT上肝内の不均一な低吸収域を呈した可能性も考えられる。本例における膵炎、肝障害の直接的な原因は不明であるが、前述の薬剤や輸液等に起因する可能性が示唆された。

膵仮性嚢胞は経皮的にドレナージを行って治療しようとしても、膵管と交通があるものは長期間のドレナージとなることがあり、ときに難治性の膵液皮膚瘻となる場合がある。また手術にて仮性嚢胞を除去しても、再発することが多

く治療に難渋する⁵⁾。これに対し経皮経胃アプローチによる膵嚢胞ドレナージは、たとえ膵管との交通があり永久的な瘻孔が出来ても、胃の内腔へ膵液が流出するため膵液皮膚瘻や再発等を起こしにくい⁵⁾。

小児の膵仮性嚢胞は約80%は経過観察にて自然消失すると報告されており⁶⁾、Karaguzelら⁷⁾は小児膵仮性嚢胞の治療法の第一選択としての経皮的ドレナージを疑問視し、その適応は感染を合併したものや再発例に効果的であると述べている。彼らは小児の膵仮性嚢胞10例に対し8例の経皮経胃膵嚢胞ドレナージを、2例に外瘻や手術的にドレナージを行い、最長15年間の長期経過観察を報告している。その結果経皮経胃アプローチは経皮的な直接ドレナージに比し、入院日数が短く、長期観察において再発例もなく有用な方法であると述べている。本例は初回ドレナージに約1ヵ月チューブを留置したにもかかわらず仮性嚢胞が再発し、またドレナージチューブからの造影にて嚢胞と膵管との交通を確認したため、2回目は通常の経皮経胃仮性嚢胞ドレナージに加え、胃後壁の穿通部のバルーン拡張術を併用した。これはカテーテル周囲の経路内腔が拡大し、そこを膵液が通ることによりカテーテル抜去後の閉塞を防ぎ、経路がより半永久的に保たれるようにするためである⁸⁾。バルーン拡張は胃後壁と仮性嚢胞が広い範囲で強固に癒着しており、拡張操作によってもこの癒着が剥がれないという前提が必要となるが、山内⁵⁾は成人例において、ドレナージチューブ留置1週間後に経路が安定した後、週1～2回拡張し2週間ほどかけて最終的に10～15mm程度まで径を広げることを推奨している。今回は成人に比し体格の小さい小児であるため10mm径のバルーンを使用した。

本例のような仮性嚢胞の再発が予測される場合にはバルーン拡張術を併用することで、胃膵仮性嚢胞瘻が十分に形成され再発予防に有用な

方法と思われた⁸⁾。

考 察

脳性麻痺患児にみられた膵炎後の仮性嚢胞に対し、経皮経胃嚢胞ドレナージを施行した1例を報告した。膵炎の原因として薬剤の関与が疑われたが、確定は困難だった。本例のように膵管と交通がある場合はバルーン拡張術を併用することで胃膵仮性嚢胞瘻が確実となり再発予防に有用と思われた。

本論文の要旨は第37回日本小児放射線学会(2001年6月、千葉)において発表した。

●文献

- 1) Levin TL, Berdon WE, Siegel RR, et al : Valproic-acid-associated pancreatitis and hepatic toxicity in children with endstage renal disease. *Pediatr Radiol* 1997 ; 27 : 192-193.
- 2) 桃田哲也, 伊藤誠子, 小林 謙, 他 : バルブプロ酸ナトリウム投与中に発症した急性膵炎の1例. *脳と発達* 1993 ; 25 : 453-458.
- 3) Sepulveda VAC, Lopez AE, Yanez LP, et al : Sodium diphenhydantoin as a probable cause of pancreatitis. *Rev Gastroentero Mex* 1999 ; 64 : 186-189.
- 4) Lashner BA, Kirsner JB, Hanauer SB : Acute pancreatitis associated with high-concentration lipid emulsion during total parenteral nutrition therapy for Crohn's disease. *Gastroenterology* 1986 ; 90 : 1039-1041.
- 5) 山内栄五郎 : 膵炎 : ドレナージ. *消化器病セミナー* 1998 ; 70 : 191-203.
- 6) King LR, Siegel MJ, Balfe DM : Acute pancreatitis in children : CT findings of intra- and extrapancreatic fluid collections. *Radiology* 1995 ; 195 : 196-200.
- 7) Karaguzel G, Senocak ME, Buyukpamukcu N, et al : Surgical management of the pancreatic pseudocyst in children : A long-term evaluation. *J Pediatr Surg* 1995 ; 30 : 777-780.
- 8) 山内栄五郎, 熊野玲子, 池田隆久, 他 : CTガイド下経皮経胃膵仮性嚢胞穿刺・ドレナージ術. *胆と膵* 2001 ; 22 : 317-322.