

## 好酸球性膀胱炎と後腹膜神経鞘腫の合併した1例

深川市立総合病院泌尿器科（医長：橋本 博）

橋 本 博

旭川医科大学泌尿器科学教室（主任：八竹 直教授）

稲 田 文 衛

高 村 孝 夫

八 竹 直

A CASE OF EOSINOPHILIC CYSTITIS WITH  
RETROPERITONEAL NEURINOMA

Hiroshi HASHIMOTO

*From the Department of Urology, Fukagawa General Hospital**(Chief: Dr. H. Hashimoto)*

Fumiei INADA, Takao TAKAMURA and Sunao YACHIKU

*From the Department of Urology, Asahikawa Medical College**(Director: Prof. S. Yachiku)*

A 63-year-old female visited our department, complaining of miction pain. She had several episodes of urinary occult blood. Urinalysis included a small number of red cells, white cells and bacilli. Physical examination revealed a fist-sized mass on her right flank.

Cystoscopic examination showed a botryoid tumor with multiple erythematous raised plaques. Biopsy was reported as massive infiltration of eosinophiles in submucosal layer of the bladder, i.e. eosinophilic cystitis. Antibiotics were effective for the improvement of urine findings and symptoms within a week. IVP and CT revealed the abdominal mass as a retroperitoneal tumor with cystic degeneration, and the tumor was resected. Pathological diagnosis was benign neurinoma.

Both eosinophilic cystitis and retroperitoneal neurinoma are rare, and the concurrent occurrence of these two diseases has not been reported. Recent studies have suggested that eosinophilic cystitis may occur more frequently than suspected, and may be overlooked clinically and microscopically. This uncommon form of cystitis should be considered in the differential diagnosis especially when the patient has unexplained episodes of bladder symptoms and hematuria.

**Key words:** Eosinophilic cystitis, Retroperitoneal neurinoma

## 緒 言

好酸球性膀胱炎は、膀胱壁内の好酸球浸潤を特徴とするまれな疾患であり、現在までに主として外国文献に40例あまりが記載されているにすぎない。いっぽう、後腹膜神経鞘腫も、本邦報告例が100例あまりの

比較的まれな疾患である。

最近当科でこれら2疾患を合併した1例を経験したので、若干の文献的考案を加えて報告する。

## 症 例

患者：北〇キ〇，63歳，女性

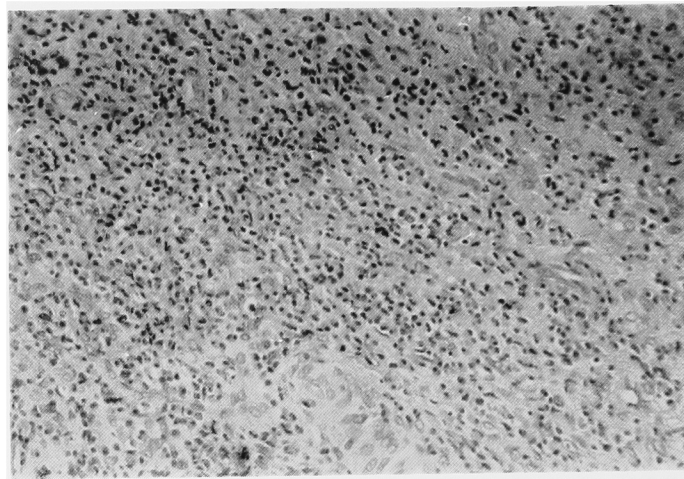


Fig. 1. 膀胱組織像. 粘膜下に著明な好酸球浸潤を認める.

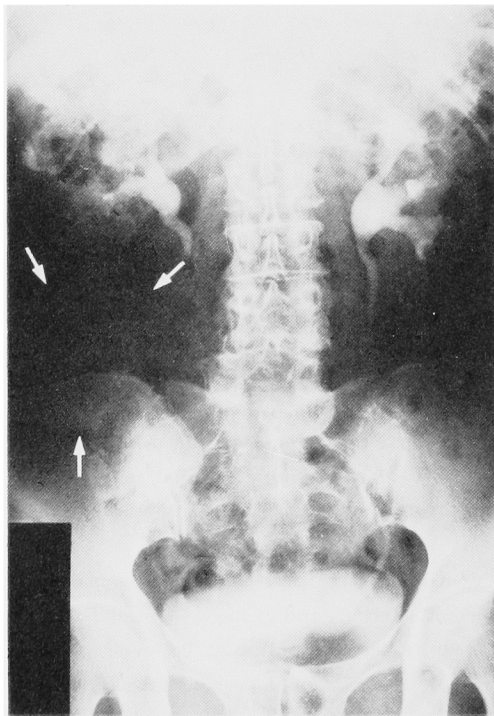


Fig. 2. IVP. 右腎が左腎よりも高位にあり、その下方に円形腫瘍陰影を認める (矢印).

初診：1984年6月2日

主訴：排尿痛

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：1972年子宮摘出術（子宮筋腫）

1981年以來の健康診断で、毎年尿潜血を指摘されていた。

現病歴：初診の約10日前より排尿痛あり、その後、

残尿感、頻尿も生じた。腹部腫瘍の自覚はなかった。初診時、右側腹部に手拳大、表面平滑で硬く、呼吸性移動を認めない腫瘍を触れた。尿所見は蛋白（-）、糖（-）、赤血球7~8個/視野、白血球5~6個/視野、桿菌（+）であったので、抗菌剤を投与しつつ膀胱鏡、IVP、腹部CTを施行した。

膀胱鏡所見および生検結果：膀胱全体に発赤をとともなう米粒大の腫瘍が多数散在し、頂部には赤褐色、大豆大でブドウの房様の腫瘍が認められた。頂部の腫瘍を生検したところ、粘膜下に著明な好酸球浸潤を認め（Fig. 1）、好酸球性膀胱炎と診断された。悪性所見は認められなかった。なお細胞診もclass Iであった。

IVPおよびCT所見：IVPでは両腎とも機能、形態に問題なかったが、右腎が左腎よりも高い位置にあり、右腎の下方、第3腰椎から仙骨上部にかけて直径約9cmの円形腫瘍陰影が認められた（Fig. 2）。CTでこの円形陰影は、嚢胞性の後腹膜腫瘍と考えられた（Fig. 3）。

1週間の抗菌剤の投与により、尿所見は赤血球0~1個/視野、白血球（-）、細菌（-）と改善し、膀胱症状も速やかに消失した。この間の血液検査では、白血球4,700/mm<sup>3</sup>、好酸球0%と好酸球増多はなく、またIgEも70IU/mlと増加を認めなかった。

以上の経過の後、1984年6月29日、後腹膜腫瘍摘出術目的に当科入院となった。

入院時血液検査成績：赤血球446×10<sup>4</sup>/mm<sup>3</sup>、血色素14.0g/dl、ヘマトクリット41.8%、白血球5,500/mm<sup>3</sup>、同分画異常なし。

TP 7.5g/dl、GOT 25U、GPT 18U、LDH 317W-U、ALP 6.6KA-U、LAP 153G-R、ZTT 7.2K-U、T-bilirubin 0.7mg/dl、T-cholesterol 201mg/dl、

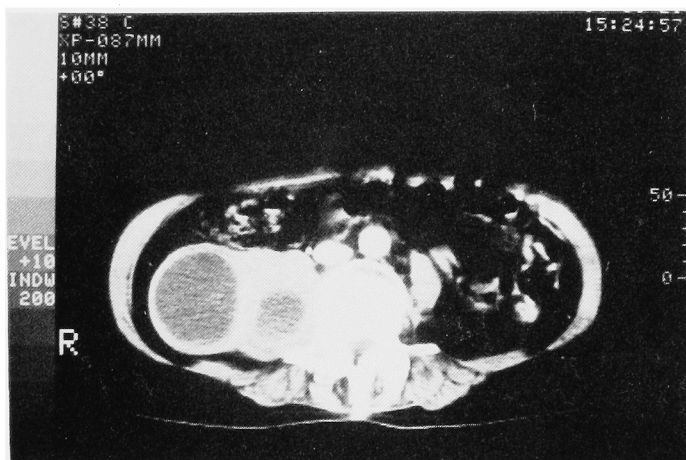


Fig. 3. 腹部 CT. 嚢胞性の後腹膜腫瘍を認める.

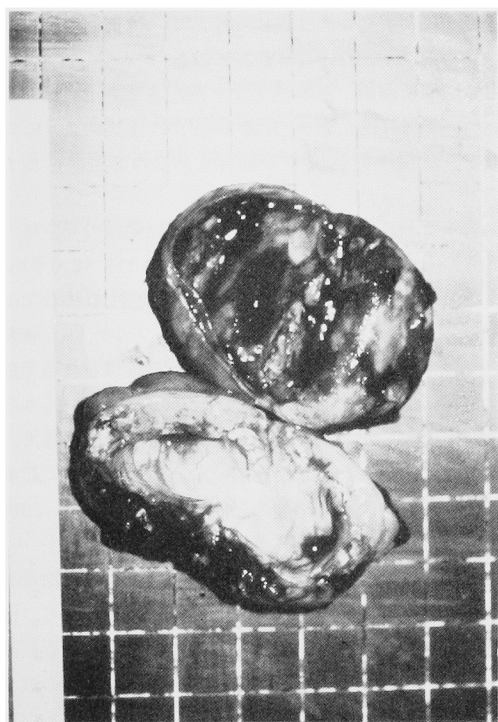


Fig. 4. 摘出標本剖面. ダルマ型の嚢胞状腫瘍である.

amylase 105 U, BUN 16.1 mg/dl, creatinine 1.0 mg/dl, 尿酸 4.8 mg/dl, Na 145 mEq/l, K 4.0 mEq/l, Cl 105 mEq/l, Ca 4.8 mEq/l, P 3.8 mg/dl, 血沈 1時間値 5 mm, 2時間値 10 mm, CRP (-), FBS 91 mg/dl.

手術所見：1984年7月4日，全身麻酔下に，上腹部横切開にて経腹的に後腹膜腔に至る．腫瘍は右腎下方

に位置し，腎や腸管との癒着はなかったが，内側半が大腰筋に埋没する形となっており，筋や腰椎と強固に癒着していた．この部の剝離はかなり困難であり出血も見られたが，最終的に腫瘍のみを完全に摘出しえた．

摘出標本 球状の2つの腫瘍（8 cm × 6 cm × 5.5 cm, 7 cm × 4.5 cm × 5 cm）が癒合したようなダルマ型のもので，全体重量は 340 gr. であった．その剖面を見ると，壁は，大きいほうの腫瘍では 5 mm 前後と薄く，小さいほうでは 10 mm 前後と厚かった．両者間の交通は認められなかった．内容は大部分漿液性の液体で，壊死組織様物や陳旧性凝血も少量認められた（Fig. 4）．

病理組織所見 長紡錘形の腫瘍細胞が多くは索状に，一部渦巻状に配列しており，悪性所見はなかった．細胞密度は比較的高く，Antoni A 型の良性神経鞘腫と診断された（Fig. 5）．

術後経過：全身状態は良好に経過したが，右下肢の運動不全，知覚鈍麻が出現した．これは腫瘍摘出時に末梢神経を損傷したためと考えられたが，しだいに軽快し1984年8月13日退院した．退院前の膀胱鏡検査では，後壁の2カ所に米粒大の腫瘤を残すのみであった．尿所見も異常なく，膀胱症状も認められなかった．

その後外来的に5カ月が経過するが，先ごろおこなった膀胱鏡検査ではとくに異常なく，また当初もっとも強い変化を認めた頂部の生検所見も若干の非特異的炎症のみであった．

## 考 察

好酸球性膀胱炎は膀胱壁内の好酸球浸潤を特徴と

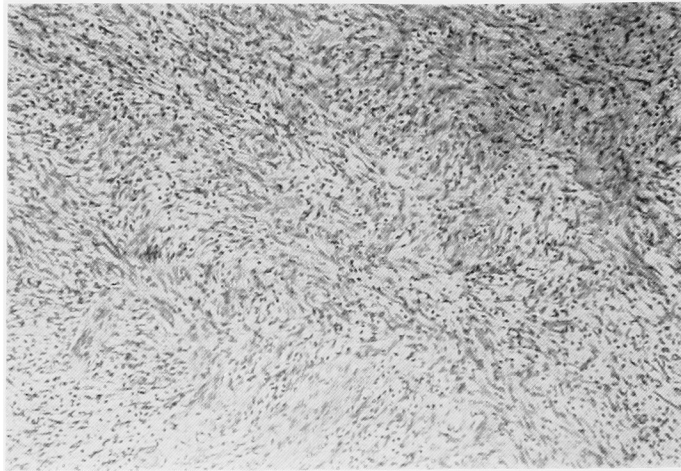


Fig. 5. 後腹膜腫瘍組織像. 長紡錘形の細胞の索状配列を認める.

し、またこれが唯一の診断根拠となるまれな疾患とされ、1960年に最初に報告されて以来、泌尿器科関係の文献には40例あまりが記載されているにすぎない<sup>1)</sup>。しかし、臨床的に他の膀胱炎や悪性疾患と類似した自覚所見を呈することも多く、また病理学的にも急性期に生検を施行したものの以外では診断が難しいため、実際の症例数は報告されているものよりかなり多いと想像されている<sup>2)</sup>。自験例においても、抗菌剤の投与により尿所見と自覚症状の速やかな改善を認めており、尿潜血を何度も指摘されていたという既往を考慮しなければ通常の急性膀胱炎として治療された可能性が強い。最近 Sutphin<sup>1)</sup> は、小児の好酸球性膀胱炎は大部分、対症療法のみで比較的短期間で治癒しているとし、成人と違って小児の場合、self-limited な性格が強いと報告している。成人においても実際は、自験例のように self-limited なものが多く、細菌感染を併発しなければほとんど症状もなく経過したり、通常の急性膀胱炎として治療されているものがあるのではないと思われる。しかしもちろん軽症に経過するものばかりではなく、高度の血尿の反復や膀胱容量の減少の結果、膀胱全摘を余儀なくされた症例も報告されており<sup>3)</sup>、慎重に経過を追う必要があるといえる。

本症の病因はいまだあきらかではないが、好酸球浸潤という病態から、膀胱レベルでの急性アレルギー反応とする説が大勢を占め、強いアレルギー歴を持つ症例も報告されている。しかしそのような症例も報告例の半数に満たず、また末梢血の好酸球増多や immunoglobulin (IgE, IgA) の高値も報告されているものの、これらのまったく見られない症例も多く、重症度との関連性も見い出されていない<sup>4-7)</sup>。自験例では、

あきらかなアレルギー歴はなく、また末梢血好酸球、IgE はともに正常範囲内であった。

治療は抗菌剤、抗ヒスタミン剤、ステロイド剤などを用いた保存的治療が主であるが、上述のようにこのような治療に抵抗する場合もあるので注意を要する<sup>3,5)</sup>。

いっぽう、後腹膜腫瘍における神経鞘腫の発生は、良性の場合では Scanlan<sup>8)</sup> の152例中3例(2.0%)、天野ら<sup>9)</sup> の734例中51例(6.9%)、悪性の場合では Scanlan<sup>8)</sup> の536例中5例(0.9%)と少ない。著者が文献上確認しえた本邦報告例は、自験例を含めて良性70例、悪性33例である。良性の70例についてみると、男35例、女34例(不明1例)と男女ほぼ同数で、年齢は7歳から78歳までと広く分布し、50歳代に最多である。症状は腹部腫瘤の自覚がもっとも多く、70例中54例(77%)に見られている。

後腹膜腫瘍の診断はさまざまな画像法を用い総合的になされるが、超音波断層法、CT が有力である。治療は良性神経鞘腫の場合、被膜を含めた腫瘍の全摘出を原則とし、予後は一般に良好であるが、被膜の取り残しはときに再発や悪性化をもたらすことがあるので注意を要する<sup>10)</sup>。

上記2疾患—好酸球性膀胱炎と後腹膜神経鞘腫—はいずれも原因があきらかではなく、ましてや本症例のような、両者の合併の意義は不明である。このような症例は、著者の検索した範囲では国内、国外とも報告されておらず、2疾患を同時に診断しえたきわめてまれな例といえる。しかし、上述のように好酸球性膀胱炎はそれほどまれな疾患ではない可能性も考えられ、今後症例数の増加とともに、病因、病態の解析、また合併疾患とその意義の解明も進むことが期待される。

## 結 語

好酸球性膀胱炎と後腹膜神経鞘腫の合併した1例を報告し、好酸球性膀胱炎が臨床的にも病理学的にも見過ごされている可能性を強調した。

## 文 献

- 1) Sutphin M and Middleton AW Jr : Eosinophilic cystitis in children : A self-limited process. *J Urol* **132**: 117~119, 1984
- 2) Hellstrom HR, Davis BK and Shonnard JW : Eosinophilic cystitis. A study of 16 cases. *J Clin Path* **72**: 777~784, 1979
- 3) Sidh SM, Smith SP, Silber SB and Young JD Jr: Eosinophilic cystitis : Advanced disease requiring surgical intervention. *Urology* **15**: 23~26, 1980
- 4) Rubin L and Pincus MB : Eosinophilic cystitis: The relationship of allergy in the urinary tract to eosinophilic cystitis and the pathophysiology of eosinophilia. *J Urol* **112**: 457~460, 1974
- 5) Itatani H, Hasegawa T and Sonoda T : Eosinophilic cystitis. *泌尿紀要* **21**: 289~293, 1975
- 6) Kessler WO, Clark PL and Kaplan GW : Eosinophilic cystitis. *Urology* **6**: 499~501, 1975
- 7) Littleton RH, Farah RN and Cerny JC : Eosinophilic cystitis : An uncommon form of cystitis. *J Urol* **127**: 132~133, 1982
- 8) Scanlan DB : Primary retroperitoneal tumor. *J Urol* **81**: 740~745, 1959
- 9) 天野正道・田中啓幹・大森弘之・佐藤義信：後腹膜類皮嚢腫の1例—後腹膜腫瘍本邦報告例1, 104例の統計的観察—。西日泌尿 **37**: 734~741, 1975
- 10) Pack GT and Tabah EJ : Primary retroperitoneal tumors, a study of 120 cases. *Int Abstr Surg* **99**: 209~231, 1954

(1985年3月6日受付)