

尿管に発生した炎症性偽腫瘍の1例

大島 純平¹, 木下 竜弥¹, 鄭 則秀¹, 原田 泰規¹
岡 聖次¹, 西村 健作¹, 森 清²

¹独立行政法人国立病院機構大阪医療センター泌尿器科

²独立行政法人国立病院機構大阪医療センター病理部

INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR OF THE URETER:
A CASE REPORT AND A REVIEW

Jumpei OSHIMA¹, Tatsuya KINOSHITA¹, Norihide TEI¹, Yasunori HARADA¹,
Seiji OKA¹, Kensaku NISHIMURA¹ and Kiyoshi MORI²

¹The Departments of Urology, Osaka National Hospital

²The Departments of Pathology, Osaka National Hospital

We report a case of inflammatory pseudotumor of the ureter. An 81-year-old man who had an operation of pelvic exenteration with ileal conduit presented with right flank pain. Computed tomography revealed a 16 mm mass of the right ureter with right hydronephrosis and renal atrophy. The mass increased in size during follow up. Right nephroureterectomy was performed with suspicion of ureteral cancer. Histopathological finding showed an inflammatory pseudotumor. No obvious recurrence has been observed for 33 months after the surgery.

(Hinyokika Kyo 63 : 403-406, 2017 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_63_10_403)

Key words : Inflammatory pseudotumor, Upper urinary tract

緒 言

炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) は紡錘形細胞と炎症細胞の浸潤により腫瘤を形成する炎症性病変と定義される¹⁾。今回、われわれは尿管に発生した炎症性偽腫瘍の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者 : 81歳, 男性

主 訴 : 右腰背部痛

既往歴 : 1959年十二指腸穿孔

1987年直腸癌にて骨盤内臓全摘除術, 回腸導管造設術

2001年肝細胞癌にて肝部分切除術

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2010年5月右尿管結石, 水腎症を指摘され初診となる。右腎は尿管結石により高度の萎縮を認め, 無機能腎と判断したため無治療経過観察としていた。2013年10月右腰背部痛が出現したため当科受診となった。

入院時現症 : 右腰背部痛あり。CVA tenderness (-)。

一般血液検査 : WBC 5,900/ μ l, RBC 396 \times 10⁴/ μ l, Hb 9.6 g/dl, Plt 33.5 \times 10⁴/ μ l

生化学検査 : Na 140 mEq/l, K 4.5 mEq/l, AST 27 U/l, ALT 13 U/l, LDH 151 U/l, BUN 15 mg/dl, Cre 0.72 mg/dl, CRP 0.68 mg/dl と軽度の貧血を認めた。

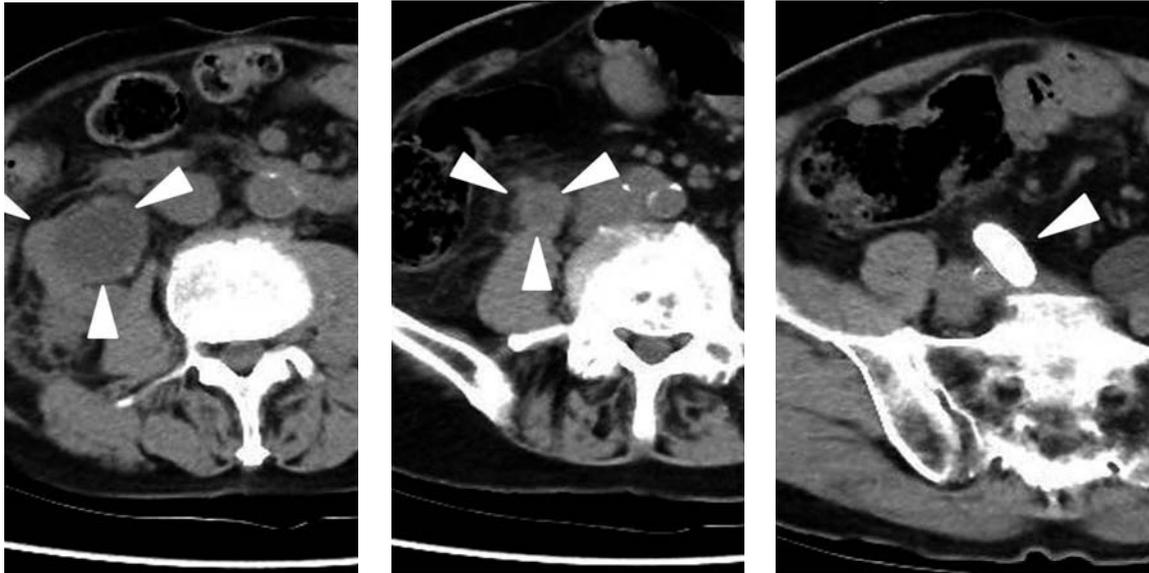
尿検査・沈渣 : 赤血球 20~29/HPF, 白血球 100以上/HPF

尿細胞診 : 陰性

画像所見 : 2013年11月に施行した腹部単純CTでは右尿管に16 mm大の腫瘤とその尾側に24 mm大の尿管結石を認めた。また, 右水腎症を伴い, 右腎は萎縮していた (Fig. 1)。傍大動脈領域に13 mm大のリンパ節腫大を認めた。右尿管腫瘍を疑い, 手術を提示したが, 同意を得られず経過観察の方針となった。

3カ月後の腹部造影CTにて右尿管腫瘍は壁肥厚が増強し造影効果を認めた (Fig. 2)。また尿管壁外の不整像を認めた。以上から良性腫瘍の可能性は否定できないものの, 尿管癌を第一に考えた。無機能腎であったことから確定診断を兼ね, 右尿管癌 cT4N1M0 と診断のもと2015年4月後腹膜鏡下尿管全摘除術を施行した。

手術所見 : 後腹膜鏡下に手術を開始した。外側円錐筋膜を切開後, 尿管とCTで指摘の結石を同定したが結石から頭側は腎周囲脂肪を含め強固な癒着を認めた。腎動脈は確保, 処理できたものの腎上極と肝臓との癒着がきわめて強いため腎の可動性が得られず, 開腹手術に移行した。腎上極と肝臓とは一塊となってお



a) 右萎縮腎

b) 右尿管腫瘤

c

Fig. 1. a-c: Plain CT demonstrated a 16 mm mass of the right ureter (b, arrow) with right hydronephrosis (c, arrow) and renal atrophy (a, arrow).



腹部単純 CT (2013年11月)



腹部造影 CT (2014年2月)

Fig. 2. Contrast-enhanced CT 3 months after the plain CT demonstrated increase in size of the mass.

り、肝臓の一部を腎臓につける形で切除し、腎の可動性を得た上で、腎、尿管を摘除した。尿管は IVC と強固に癒着していたため回腸導管吻合部まで剥離困難であり、尿管は一部残す形で終了した (リンパ節は癒

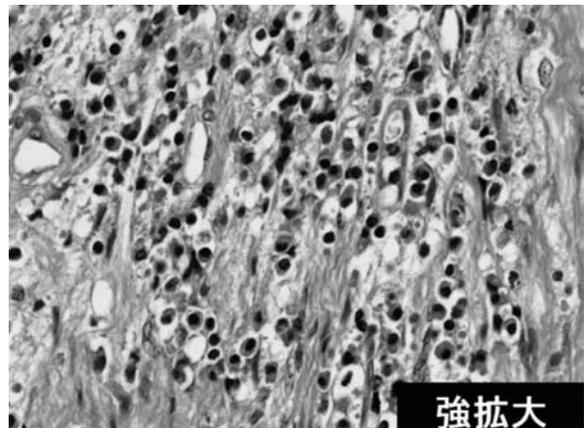
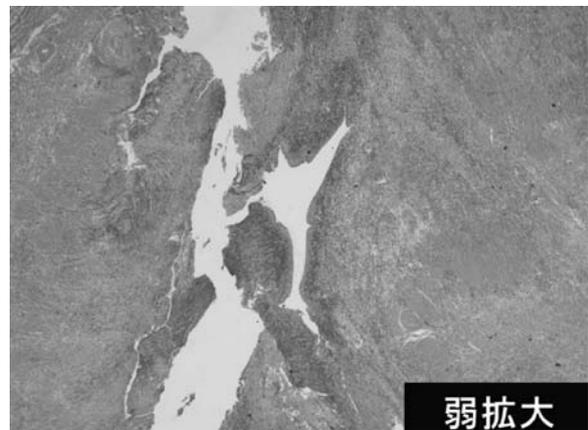


Fig. 3. Histopathological findings shows infiltration of plasma cells and lymphocytes.

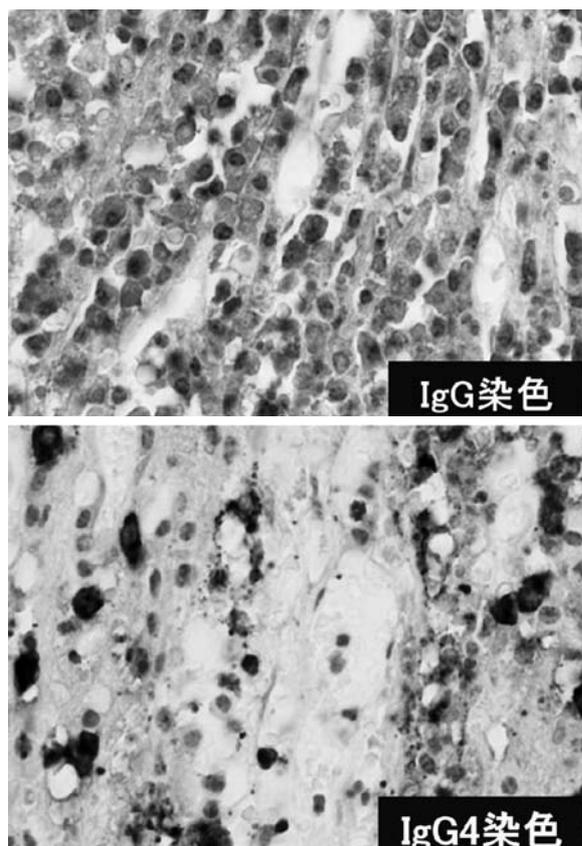


Fig. 4. IgG4 immunostain reveals plasma cells were negative for IgG4.

着が強固であったため可及的に郭清を行った). 手術時間 8 時間 50 分, 出血 190 ml であった.

病理所見: HE 染色では尿管に強い形質細胞, リンパ球の浸潤を認めたが, 悪性所見は認めなかった (Fig. 3). 免疫染色において IgG4 陽性細胞は 10% 未満であった (Fig. 4). 以上より炎症性偽腫瘍と診断した.

術後 33 カ月経過し, 明らかな再発転移を認めていない.

考 察

炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor; IPT) は紡錘形細胞と炎症細胞の浸潤により腫瘤を形成する炎症性病変と定義される¹⁾. 炎症性偽腫瘍はその成因・病理学的な性質から, 1) 感染あるいは炎症の修復機転による腫瘤形成, 2) 活動性感染による炎症性腫瘍, 3) EBV 感染症で見られる濾胞樹状細胞による腫瘍, 4) 炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 (inflammatory myofibroblastic tumor; IMT) に分類される¹⁾.

2004 年には炎症性偽腫瘍の病理組織において IgG4 陽性形質細胞の浸潤を認めたと報告され, 以後 IgG4 陽性形質細胞を伴う炎症性偽腫瘍の報告が散見される²⁾. IgG4 関連疾患は 2011 年に診断基準が示されている (1. 臨床的に単一または複数臓器に特徴的なび

まん性あるいは限局性腫大, 腫瘤, 結節, 肥厚性炎症を認める. 2. 血液学的に高 IgG4 血症 (135 mg/dl 以上) を認める. 3. 病理組織学的に以下の 2 つ (組織所見: 著明なリンパ球, 形質細胞の浸潤と線維化を認める/IgG4 陽性形質細胞浸潤: IgG4/IgG 陽性細胞比 40% 以上, かつ IgG4 陽性形質細胞が 10/HPF 以上)). 炎症性偽腫瘍と診断された症例の中には IgG4 関連疾患が含まれていた可能性がある.

自験例では尿管結石が存在し, 回腸導管手術の後は尿路感染を繰り返しており感染あるいは炎症の修復起点による腫瘤形成であると考えられた. IgG4 関連疾患の臨床診断基準に照らし合わせると術前の IgG4 測定を施行していないため疑診群となる可能性は否定できない.

術後補助診断として行った IgG・IgG4 免疫染色で陰性 (陽性細胞 10% 以下) であり基準を満たすのは臨床診断基準 1 のみの 1 項目であり IgG4 関連疾患の可能性は低いと考えられる.

炎症性偽腫瘍は肺での発生が最も多く, 好発部位とされ, 肺以外では心, 胃, 肝, 脾, リンパ節, 軟部組織などほぼすべての臓器での報告がある. 肺外発生のうち尿路系では膀胱が 9.5% を占め³⁾, 上部尿路についてはさらに少なく, 自験例を含め 25 例のみである. 男女比は男性にやや多く, 主訴は 25 例中 9 例で肉眼的血尿, 9 例で背部痛あるいは腹痛を認め, 3 例で発熱を認めた. 術前診断で腎盂癌, 尿管癌と診断された例は 18 例で, 良性腫瘍と診断されたものは 1 例であった. 炎症性偽腫瘍と術前に診断しえた症例は 6 例であった (Table 1A). この 6 例のうち, 生検にて診断されたのは 3 例で, このうち 2 例で腎摘除術を回避可能であった (Table 1B).

炎症性偽腫瘍の多くは良性の経過をたどるが, IMT は 2004 年の WHO 分類で良悪性中間腫瘍と分類されており, 10~20% で再発, 5% の症例で遠隔転移を起

Table 1A. Characteristics of 25 patients with inflammatory pseudotumor of the upper urinary tract

上部尿路炎症性偽腫瘍の本邦報告 25 例

性別	
男性	17 例
女性	8 例
主訴	
肉眼的血尿	9 例
背部痛・腹痛	9 例
発熱	3 例
術前診断	
腎盂・尿管癌	18 例
良性腫瘍	1 例
炎症性偽腫瘍	6 例

Table 1B. Characteristics of 25 patients with inflammatory pseudotumor of the upper urinary tract

上部尿路炎症性偽腫瘍

術前診断	生検施行	治療	概要
腎盂癌・尿管癌 18例	なし	腎尿管全摘・腎摘	
良性腫瘍 1例	なし	腎摘	境界明瞭腎盂粘膜下腫瘍
炎症性偽腫瘍 6例	なし 3例	経過観察 保存的加療 尿管部分切除	抗生剤投与・30日後CTで腫瘍消失 術中迅速診断
	あり 3例 尿管鏡生検 開放生検 CTガイド下生検	尿管部分切除 腎尿管全摘 保存的加療	術中迅速診断 開放生検で良性の診断 ステロイド投与後縮小せず

こすとされている⁵⁾。また、2001年に IMT における anaplastic lymphomakinase (ALK) の発現が報告されており、約半数は陽性と言われている^{3,4)}。ALK は遺伝子座が染色体 2p23 に存在する受容体型チロシンキナーゼで、未分化大細胞リンパ腫や横紋筋肉腫、神経芽細胞腫、膠芽腫、悪性黒色腫などでも陽性となることが知られている⁶⁾。病理組織による診断となるが、ALK 発現を確認することで腫瘍性増殖を示唆する根拠となる。炎症性偽腫瘍の中でも、ALK 陽性例では IMT と診断し、悪性腫瘍に準じたフォローアップを行う必要があると考えられる。

炎症性偽腫瘍と腎盂尿管癌との鑑別には尿細胞診あるいは生検が有用と考えられる。また、炎症性偽腫瘍には IMT が含まれており、かつその術前診断が困難であることより保存的加療は慎重に選択すべきと考えられる。

結 語

本論文の要旨は第229回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。炎症性偽腫瘍について文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) 橋本 洋：炎症性偽腫瘍をどうとらえるか。病理と臨 **25**：418-420, 2007
- 2) Zen Y, Harada K, Sasaki M, et al.: IgG4-related sclerosing pancreatitis-associated sclerosing cholangitis: do they belong to a spectrum of sclerosing pancreatitis? *Am J Surg Pathol* **28**: 1193-1203, 2004
- 3) Coffin GM, Wotterson J, Priest JR, et al.: Extrapulmonary inflammatory myoblastic tumor (inflammatory pseudotumor): a clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases. *Am J Surg Pathol* **19**: 859-872, 1995
- 4) Coffin CM, Patel A, Perkins S, et al.: ALK1 and p80 expression and chromosomal rearrangements involving 2p23 inflammatory myofibroblastic tumor. *Mod Pathol* **14**: 569-576, 2001
- 5) Flether CD, Unni KK, Mertens F, et al.: Inflammatory myofibroblastic tumor. World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and Genetics. Tumours of Soft Tissue and Bone, IARC Press, Lyon, 91-93, 2002
- 6) F Pulford K, Morris SW and Turturro F: Anaplastic lymphoma kinase proteins in growth control and cancer. *J Cell Physiol* **199**: 330-358, 2004

(Received on March 11, 2017)
(Accepted on June 13, 2017)