

皮下腫瘍で発見されたびまん型黄色肉芽腫性腎盂腎炎の1例

澤崎 晴武, 清川 岳彦, 吉田 健志, 河原 貴史
井上 高光, 宗田 武, 神波 大己, 吉村 耕治
高橋 毅, 中村英二郎, 西山 博之, 伊藤 哲之
賀本 敏行, 小川 修
京都大学医学部泌尿器科学教室

XANTHOGRANULOMATOUS PYELONEPHRITIS PRESENTING A SUBCUTANEOUS MASS IN THE LOWER ABDOMEN: A CASE REPORT

Harutake SAWAZAKI, Takehiko SEGAWA, Kenji YOSHIDA, Takashi KAWAHARA,
Takamitsu INOUE, Takeshi SODA, Tomomi KANBA, Koji YOSHIMURA,
Takeshi TAKAHASHI, EijiRO NAKAMURA, Hiroyuki NISHIYAMA, Noriyuki ITO,
Toshiyuki KAMOTO and Osamu OGAWA

The Department of Urology, Kyoto University Graduate School of Medicine

A 72-year-old female presented with the complaint of left lower abdominal swelling in May, 2005. Laboratory analysis revealed elevated white blood cell counts and C-reactive protein. Abdominal computed tomography showed left ureteral calculi, left hydronephrosis and a mass extending through the perinephric space, psoas major muscle into the left flank and lower abdomen. Echo-guided needle mass biopsy was performed. Histopathological findings revealed xanthogranulomatous changes. Under the diagnosis of diffuse xanthogranulomatous pyelonephritis extended into psoas muscle and subcutaneous tissue, antibiotic therapy was given for 5 months. After reduction of subcutaneous mass, left nephroureterectomy was performed. Histopathological findings revealed xanthogranulomatous pyelonephritis and ureteritis. Postoperative course was uneventful without any relapse of inflammation.

(Hinyokika Kiyō 52 : 875-878, 2006)

Key words: Xanthogranulomatous pyelonephritis, Diffuse type, Lower abdominal mass

緒 言

黄色肉芽腫性腎盂腎炎は、病理学的に泡沫細胞の著明な増殖を特徴とする腎の慢性化膿性炎症の特殊な一型である。背部、下腹部皮下を含め広範囲に炎症の波及したびまん型黄色肉芽腫性腎盂腎炎に対し、抗菌薬投与にて炎症反応の正常化および皮下腫瘍の著明な縮小を確認した後、感染責任病巣摘出目的にて腎尿管全摘除術を施行した1例を報告する。

症 例

患者：70歳代，女性
主訴：左下腹部の腫脹，熱感
既往歴：40歳代，左尿管結石にて対外衝撃波結石破碎術
家族歴：特記事項なし
現病歴：2004年10月から腰部痛あり。全身倦怠感あるも，発熱は認めなかった。2005年5月下旬から左下腹部の腫脹，熱感を認め，近医受診。血液検査にて炎

症反応高値を，腹部CTにて左水腎症，左尿管結石，背部腫瘍，下腹部腫瘍を認め，Cefcapene (Flomox®)を処方され，6月15日，紹介となる。

現症：左下腹部の腫瘍は柔らかく触れ，発赤，圧痛なく，熱感は軽度であった。

検査成績：血液検査ではWBC $11.5 \times 10^3/\mu\text{l}$ (好中球78.7%，リンパ球18.1%)，CRP 1.9 mg/dl と炎症反応高値以外，異常所見を認めなかった。尿沈渣はRBC 5~9/hpf，WBC 1~4/hpfで，尿培養は陰性，尿細胞診はclass IIであった。

画像検査：KUBにてU1，U3に結石を認め，腹部CTでは左尿管結石(U1)と水腎水尿管症，長期の尿路閉塞に伴う腎実質の菲薄化がみられた。皮下に達する腫瘍は左尿管結石(U1)から腸腰筋に波及，背部，下腹部皮下に連続していた(Fig. 1A-1, A-2)。

経過：画像検査から尿路結核などによる後腹膜膿瘍もしくは尿路上皮癌の浸潤などを疑い，6月24日，背部および左下腹部皮下腫瘍に対しエコーガイド下針生検を施行した。病理組織学的所見として豊富な泡沫状

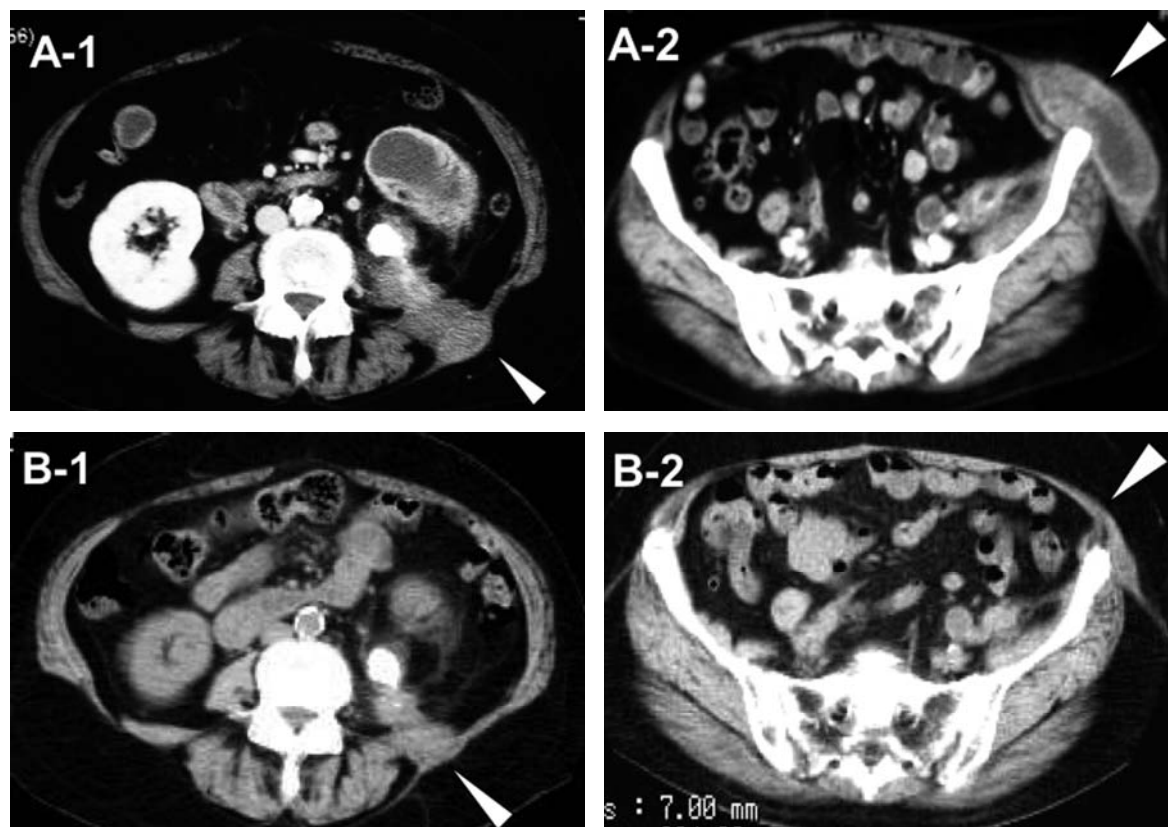


Fig. 1. Abdominal CT scan before (A-1, A-2) and after (B-1, B-2) administration of antibiotics. The size of left flank mass and lower abdominal mass was apparently reduced with the antibiotics (arrowhead).

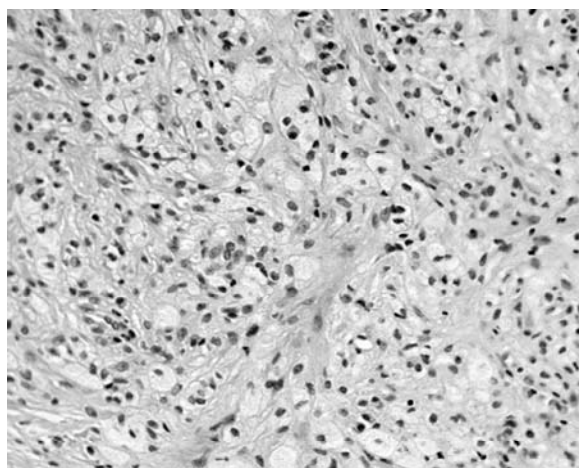


Fig. 2. Microscopic findings of the mass biopsy show infiltration of lymphocytes and lipid-laden macrophages.

細胞質と小型円形核を有する細胞が浸潤，集簇している像を認め (Fig. 2)，免疫染色にて組織球のマーカーである CD68 が強陽性を示し，上皮性マーカーである AE-1/AE3 や EMA は陰性，腎細胞癌マーカーである CD10 は陰性であり黄色肉芽腫と診断した。画像所見を含め，広範囲に炎症の波及したびまん型黄色肉芽腫性腎盂腎炎と診断した。前医から継続されていた Cefcapene にて WBC $8.1 \times 10^3/\mu\text{l}$ ，CRP 0.9 mg/dl と炎症反応は改善し，腹部 CT でも左下腹部，背部腫瘍の縮小傾向を認めた。抗菌薬を継続し，最終的に感染

責任病巣である左腎尿管を摘除することにした。尿培養が陰性であったため，起因菌として頻度の高い *E. coli*，*Proteus* を疑い，Cefcapene から Ceftriaxone (Rocephin®) に変更し 1 カ月治療を行ったが，腹部 CT では腫瘍の縮小を認めず，再度 Cefcapene に変更したところ再び縮小傾向を示した。計 Cefcapene 4 カ月間，Ceftriaxone 1 カ月間投与の後，炎症反応は正常化，背部および下腹部皮下腫瘍は著明に縮小した (Fig. 1B-1, B-2)。12月2日，左腎尿管全摘除術を施行した。

手術所見：腰部斜切開にて後腹膜にアプローチした。後腹膜腔では腎尿管と周囲組織（腹膜，腸腰筋）との強固な癒着が認められた。Gerota 筋膜の層で腎尿管を剥離した。肉芽腫は左尿管結石 (U1) から連続し腸腰筋内に波及していた。全切除することは困難で腸腰筋の手前で分断した。傍腹直筋切開にて下部尿管を剥離し (U1, U3 結石，肉芽腫の一部を含む) 腎尿管を一塊に摘出した。

摘出腎の腎盂内は，黄白色の膿尿で充満していた。腎盂尿管内には黄色結節が多数認められた。U1 の結石から連続した肉芽腫は著明な黄色調を呈していた。

病理診断は黄色肉芽腫性腎盂腎炎，尿管炎で，悪性所見は認められなかった。腎盂尿培養，肉芽腫培養は陰性であった。結石分析の結果，燐酸カルシウム 86%，シュウ酸カルシウム 14%であった。術後，残存

病変に対して Cefcapene を投与した。術後 2 カ月目の CT では病変の大きさに変化はなく炎症反応は陰性であり, Cefcapene を中止して慎重に経過観察中である。

考 察

黄色肉芽腫性腎盂腎炎は, 慢性化膿性炎症の特殊な一型で, 組織学的に検索しえた腎盂腎炎の約 1% を占める。1916年に Schlangenhauer が最初に報告¹⁾し, 本邦では土屋らが初めて報告²⁾して以来, 現在まで PubMed にて検索すると約650例の報告がある。

症状は, 発熱, 側腹部痛, 全身倦怠感, 体重減少などで, 検査所見は, 白血球の増加, 赤沈の亢進, 膿尿, 貧血を認めることが多い。50~60歳代の女性(男女比 1:2~4) に好発するが, 小児の報告例もみられる³⁾。長期にわたる尿路閉塞と感染が発生要因として大きく関与しており, 疾患の約70%で尿路結石が合併し, その内約半数が珊瑚状結石である。また, 糖尿病⁴⁾, 移植腎⁵⁾, 透析患者⁶⁾でも発生が報告されている。尿培養は70%で陽性となり, 大腸菌, プロテウスを認めることが多いが, ブドウ球菌, 緑膿菌の報告例⁷⁾もある。尿路の閉塞に伴って慢性の炎症性変化が加わり, 静脈の閉塞や血腫によって局所に多数の脂肪が蓄積しこれを組織球が貪食して黄色を呈する⁸⁾。

多くの場合片側発生であるが, 両側発生の報告もある⁹⁾。形態的にびまん型 (diffuse type) と限局型 (focal type) に分類される。びまん型は80~90%を占め, 長期の閉塞と感染により無機能腎であることが多い。炎症の波及の程度により stage I~III に分類され¹⁰⁾, I:腎実質に限局, II:腎周囲脂肪織まで波及 (Gerota 筋膜内), III:傍腎組織や周囲臓器への波及である。Stage III では, 腸腰筋に膿瘍を形成したり, 結腸, 気管支や皮膚と瘻孔を形成することもある。限局型は, 尿路閉塞や結石を合併することが少なく, 腎腫瘍との鑑別が問題となる場合が多い¹¹⁾。

CT は, 本疾患の画像評価として最も有用で, 炎症の波及の範囲や結石の有無を評価できる。びまん型では rim enhancement (中心部位に低吸収域が存在し, その外側に造影される部分を持つ) が特徴的で, Bear paw sign といわれることもある¹²⁾。MRI は結石の描出では CT に劣るが, 腎外への炎症の拡がりを詳細に評価したり軟部組織との関係をより詳細に評価する上で優れており, とくに fistula の描出には最適である¹³⁾。

教科書的治療としては¹⁴⁾ “4分の3の症例で黄色肉芽腫は感染しているため, 炎症性病変はすべて摘除することが重要である”と述べられている。ただ, 実際には炎症の波及している部位をすべて摘除することが困難な症例も多い。1966年以降に報告された治療法

Table 1. 傍腎組織波及 (stage III) の治療

部 位	報告例	治療法			死亡例
		全切除	可及的 切除	切除範 囲不明	
腎結腸瘻	15	10	5	0	0
腎皮膚瘻	9	0	9	0	0
腸腰筋膿瘍	6	0	6	0	1
腎気管支瘻	4	1	3	0	0
腎十二指腸瘻	3	0	3	0	0
横隔膜膿瘍	1	1	0	0	0
腎胃瘻	1	0	0	1	0
肺膿瘍	1	0	1	0	0
腎空腸瘻	1	0	1	0	0
計	41	12	28	1	1

の記載のある stage III 41例 (Table 1) を検討すると, 波及部位としては多い順に結腸, 皮膚, 腸腰筋, 気管支, 十二指腸, 横隔膜であった。施行された治療について検討すると, 腎結腸瘻に対する腎摘除術+結腸部分切除術のように炎症波及部の全切除ができた例もあるが, 腸腰筋, 皮膚に波及した例では全切除された報告はなく, 腎を含む周囲の可及的摘除に加え, ドレナージや抗菌剤にて治療されており, 死亡例の報告は1例のみであった¹⁵⁾。また文献上, 術前抗菌薬の種類や投与期間に定まったものはなく, 効果の持続している期間内に外科的治療を行うのが望ましいと思われた。本症例は, stage III に分類され炎症は腸腰筋から背部および下腹部皮下まで波及していた。抗菌薬にて炎症反応の正常化, 肉芽腫の縮小を得た後, 腸腰筋, 背部および下腹部皮下の肉芽腫を含めすべて摘除するのは困難であったため, 感染責任病巣である腎尿管全摘除術を行い再燃なく経過している。

結 語

背部および下腹部に皮下腫瘍を形成し, 針生検にて診断されたびまん型黄色肉芽腫性腎盂腎炎の1例を経験した。肉芽腫は尿管結石から腸腰筋に波及, 背部および下腹部皮下にまで連続しており, 非常に稀な症例であった。術前抗菌薬にて腫瘍の縮小, 消炎を得た後, 感染責任病巣である腎尿管全摘除術を行った。

本論文の要旨は第194回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Schlangenhauer F: Uber eingentumliche Staphyloomykosen der nieren und des pararennalen Bindegewebes. Frankfurter Z Path **19**: 139-148, 1916
- 2) 土屋文雄, 日東寺浩: 本邦最初の Xanthogranulomatous pyelonephritis (Foam cell granuloma).

- 日泌尿会誌 **58** : 110-121, 1967
- 3) Takayasu H, Ishimaru Y, Kasaki Y, et al. : Diffuse xanthogranulomatous pyelonephritis in a patient with myotonic dystrophy and cerebral palsy. *Int J Urol* **12** : 497-499, 2005
 - 4) Rodriguez-de-Velasquez A, Yoder IC, Velasquez PA, et al. : Imaging the effects of diabetes on the genitourinary system. *Radiographics* **15** : 1051-1068, 1995
 - 5) Scarpero HM and Copley JB : Xanthogranulomatous pyelonephritis in a renal allograft recipient. *Am J Kidney Dis* **30** : 846-848, 1997
 - 6) Nakatani M, Uchida J, Iwai T, et al. : Xanthogranulomatous pyelonephritis with acquired cystic disease of the kidney in a haemodialysis patient. *Nephrology (Carlton)* **8** : 101-103, 2003
 - 7) Nataluk EA, McCullough DL and Scharling EO : Xanthogranulomatous pyelonephritis, the gatekeeper's dilemma : a contemporary look at an old problem. *Urology* **45** : 377-380, 1995
 - 8) 荒木元朗, 橋本恭伸, 南里正之, ほか : 腎癌と鑑別が困難であった限局型黄色肉芽腫性腎盂腎炎の1例. *泌尿紀要* **48** : 621-624, 2002
 - 9) Suzer O, Baltaci S, Kuzu I, et al. : Bilateral xanthogranulomatous pyelonephritis in a child. *Br J Urol* **78** : 950-951, 1996
 - 10) Malek RS and Elder JS : Xanthogranulomatous pyelonephritis : a critical analysis of 26 cases and of the literature. *J Urol* **119** : 589-593, 1978
 - 11) Kumar N and Jain S : Aspiration cytology of focal xanthogranulomatous pyelonephritis : a diagnostic challenge. *Diagn Cytopathol* **30** : 111-114, 2004
 - 12) Kudalkar D, Reme P and Cunha BA : Xanthogranulomatous pyelonephritis complicated by psoas abscess. *Heart Lung* **33** : 339-342, 2004
 - 13) Kiris A, Kocakoc E, Poyraz AK, et al. : Xanthogranulomatous pyelonephritis with nephrocutaneous fistula and coexisting renal replacement lipomatosis : the report of a rare case. *Clin Imag* **29** : 356-358, 2005
 - 14) Walsh PC, Retik AB, Vaughan ED, et al. : *Campbell's Urology Eighth Edition*, pp 563-565, Saunders, Philadelphia, 2002
 - 15) Alan C, Ataus S and Tunc B : Xanthogranulomatous pyelonephritis with psoas abscess : 2 cases and review of the literature. *Int Urol Nephrol* **36** : 489-493, 2004

(Received on March 14, 2006)

(Accepted on June 1, 2006)