

後腹膜に発生した炎症性偽腫瘍（黄色肉芽腫）の1例

済生会栗橋病院泌尿器科（科長：鬼塚史朗）

近藤 恒徳，鬼塚 史朗

東京女子医科大学泌尿器科学教室（主任：東間 紘教授）

小林 裕，龍治 修，東間 紘

A CASE OF RETROPERITONEAL PSEUDOTUMOR
(XANTHOGRANULOMA)

Tsunenori KONDO and Shiro ONITSUKA

From the Department of Urology, Saiseikai Kurihashi Hospital

Hiroshi KOBAYASHI, Osamu RYOJI and Hiroshi TOMA

From the Department of Urology, Tokyo Women's Medical College

A 57-year-old male patient was admitted to our hospital for left flank pain and a slight increase in serum creatinine. He had left hydronephrosis and extrinsic stenosis of left lower ureter shown by intravenous and retrograde pyelography. Computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) demonstrated a mass along the bilateral lower ureters, the left side of which was larger ($5 \times 3 \times 4$ cm). After surgical exploration and biopsy of the tumor the patient was diagnosed as having xanthogranulomatous inflammatory pseudotumor. No malignant findings were observed. Tumor size spontaneously decreased to 20% of the original size at 2 weeks after laparotomy. The patient underwent ureterolysis because of prolonged left hydronephrosis. Approximately 3 years after development of disease, hydronephrosis has improved and the pelvic tumor has almost diminished.

(Acta Urol. Jpn. 44: 21-24, 1998)

Key words: Retroperitoneum, Pseudotumor, Xanthogranuloma

緒 言

炎症性偽腫瘍は、浸潤した炎症細胞の局所的な増殖により腫瘍を形成したものである¹⁾。本病変は肺に好発するが、肺外発生例の報告も散見される。われわれは、後腹膜腔に発生した炎症性偽腫瘍症例を経験した。腫瘍は経過中に著明に縮小し、炎症性偽腫瘍の自然経過を示唆するものとしてたいへん興味深い。ここに若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：57歳男性

既往歴：17歳時に虫垂切除術

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1994年7月左側腹部痛が出現し増悪するため、同年8月19日当科を受診した。

初診時現症：体温 35.9°C。左側腹部叩打痛を認める。

血液検査所見：WBC 8,100/ μ l，白血球分画正常（Neut 55.8%，Eosino 3.8%，Baso 1.8%，Mono 6.6%，Lymph 29.9%），RBC 482×10^4 / μ l，Plt 24.7×10^4 / μ l，BUN 16 mg/dl，クレアチニン 1.3

mg/dl と軽度の腎機能障害を認めた。電解質，肝機能は正常。CRP 0.5 mg/dl と正常。血沈 29 mm/hr と亢進していた。

尿所見：RBC 1/hpf 以下，WBC 1/hpf 以下，蛋白（-），糖（-）。

尿培養：陰性

経静脈性尿路造影：左腎よりの排泄遅延，左水腎症を認めた。

逆行性尿路造影（Fig. 1）：左下部尿管に約 5 cm にわたる狭窄を認めた。狭窄部位に対して施行した擦過細胞診は class II であった。

骨盤 MRI（1994年9月6日）（Fig. 2a）：両側下部尿管周囲に soft tissue intensity mass を認めた。Mass は左下部尿管周囲で大きく、 $5 \times 3 \times 4$ cm であった。

腹部 CT および MRI では不整な soft tissue mass が両側腎盂周囲に認められた。しかし画像上腎盂周囲腫瘍と骨盤内腫瘍とを鑑別しうる所見は認めなかった。

以上より多発性後腹膜腫瘍が疑われ、骨盤内腫瘍が左水腎症の原因と考えられた。画像上確定診断がつかないため1994年9月27日試験開腹が施行された。骨盤



Fig. 1. Retrograde pyelography showed extrinsic continuous stenosis of left lower ureter.

内の検索では、左尿管狭窄部位に一致して柔らかい黄色充実性腫瘍を認め、左尿管は腫瘍により完全に巻き込まれていた。周囲脂肪組織との境界は不明瞭で腫瘍全摘除は不可能と考えられたため、生検のみが施行された。病理組織学的には、腫瘍はおもに脂肪組織より構築され増殖した線維性組織により巻き込まれていた。強拡大では、脂肪組織内には細胞質内に脂肪顆粒を伴うマクロファージ (foamy cell) の浸潤を認め、一部好中球の浸潤も見られた (Fig. 3)。Mitosis など悪性腫瘍を示唆する所見は見られず、xanthogranulomatous pseudotumor と診断された。

開放生検後約1週間抗生剤が投与されたのみであったが、10月11日に施行されたMRIでは腫瘍は1カ月前に比べ約80%縮小していた (Fig. 2b)。両側腎盂周囲腫瘍は若干縮小したのみであった。左下部尿管周囲腫瘍は著明に縮小しているにもかかわらず左水腎症はまったく改善がないため、左腎機能保存のため10月17日尿管剥離術が施行された。腫瘍に対し再度生検術を行ったが、病理学的には前回と同様の所見であった。

術後現在まで無治療にて約3年が経過しているが、左下部尿管周囲腫瘍は消失し水腎症も改善している。両側腎盂周囲の腫瘍は縮小はしているが残存している。また術後1年ごろから新たに大動脈分岐部付近で大動脈前面に腫瘍の形成および尿管の内側への変位が

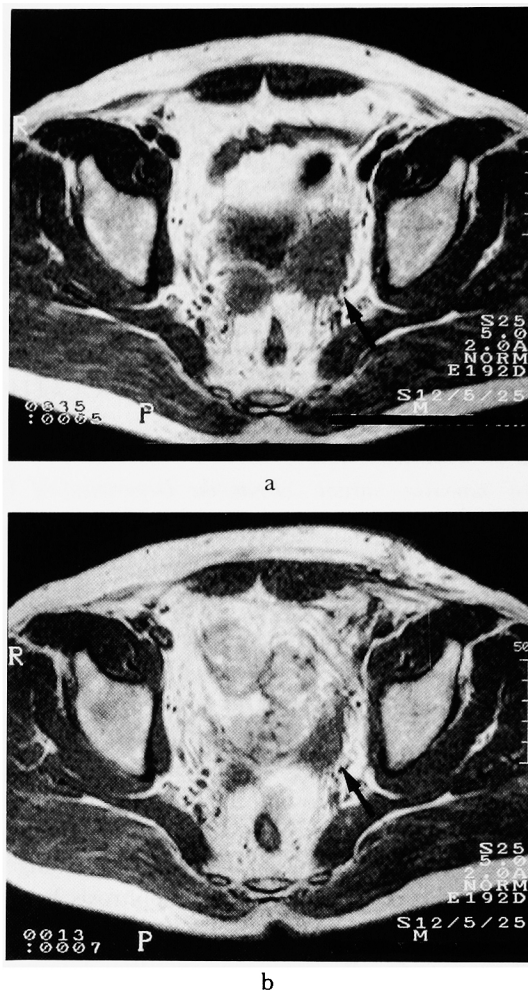


Fig. 2. a: MRI demonstrated soft tissue intensity mass along lower bilateral ureters, the left side of which was larger (5×3×4 cm). b: One month later, the tumor size spontaneously decreased by 80% when compared with the first image.

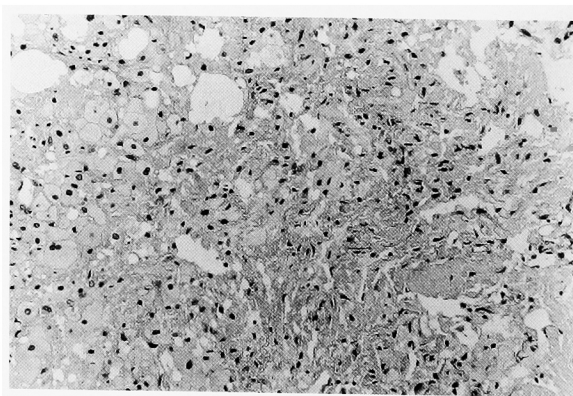


Fig. 3. Biopsied tissue revealed that the tumor was mainly composed of fatty tissue, which was infiltrated with lipid-laden macrophages (foamy cells) and occasionally neutrophils. No malignant findings were observed.

出現し、現在も認められる。この所見から、術後後腹膜線維症を合併していることが示唆されている。

考 察

炎症性偽腫瘍は、病理学的には炎症性細胞の浸潤および増殖を伴う非腫瘍性病変と定義され、核分裂像、核異型などの悪性所見を認めないことが特徴的である¹⁾ 本病変は肺に好発し、古くより plasma cell granuloma, xanthogranuloma, あるいは histiocytoma などさまざまな名称で呼ばれてきた²⁾ 近年、混乱を避けるためこれらを一括して炎症性偽腫瘍と呼び、主たる浸潤細胞によって病理学的に分類されるようになった。Johnston ら³⁾ は、plasma cell の浸潤を中心とする plasma cell granuloma type, 組織球の浸潤を中心とする xanthogranuloma type および硬化性病変を中心とする sclerosing pseudotumor に分類している。紡錘形細胞の浸潤を主とする myofibroblastic granuloma type の頻度も少なくなく、これも一つの subtype として加えておくべきと考えられる⁴⁾

炎症性偽腫瘍は肺病変が代表的であるが、肺外病変の報告例も少なくない。しかし後腹膜発生頻度は肺外発生例のわずかに約5%と報告されている⁴⁾ 本例のような後腹膜の xanthogranuloma type の炎症性偽腫瘍は、これまで黄色肉芽腫として本邦では25例が報告されており^{5,6)}、海外報告例も散見される^{7,8)} 本邦報告25例を総括すると、男女比11:14、年齢分布は16~75歳、平均年齢50.3歳である。主訴では、腹部腫瘍、腹痛が多いが特徴的なものはない。腫瘍径は1~15 cm までさまざまであるが、10 cm 以上の大型腫瘍が約半数に見られる。治療としては外科的切除をされることが多い。しかし本症例と同様に、周囲組織との癒着が強く切除が困難なことも少なくないようである。

炎症性偽腫瘍の臨床的特徴は、(1) 非特異的炎症所見、(2) 非常に良好な予後、である。本症の患者には発熱、貧血、血沈値の亢進、高グロブリン血症などの非特異的炎症所見を認めることが多く、これらが初発症状となっていることが少なくない^{1,2)} 画像上特徴的所見がなく悪性疾患を否定しえないため^{9,10)}、治療としては可及的外科的切除がなされることがほとんどである。稀に再発例も見られるが、生命予後は非常に良好である^{1,2)} しかし、再発例のほとんどは術後1年以内で起こることや⁴⁾、炎症性偽腫瘍に病理学的に類似した悪性病変群があることも報告されていることから^{11,12)}、術後1年間は十分な経過観察が必要と考えられる。

本疾患が他の腫瘍病変と異なる一番の特徴は、その興味ある自然経過であろう。Mandelbaum ら¹³⁾ は、

生検のみにとどまった症例で腫瘍が自然消退した3例を、宮口ら⁶⁾ は、手術後の残存腫瘍が自然に縮小した例を報告している。本症例でも腫瘍の自然消退を認めており、確実な病理学的診断のもとでは経過観察も一つの選択肢としてあげられるだろう。

炎症性偽腫瘍の病因については不明な点が多い。上述のように腫瘍が自然消退している症例が見られる。このことは、本疾患が感染、外傷などの免疫学的刺激に起因する慢性炎症の1型であるとの説を裏付けている^{14,15)} これまでの報告例では基礎的疾患が明らかではないことが多い。本症例は術後大動脈前面の腫瘍形成および尿管走行の内側への変位が出現し、後腹膜線維症を合併していることが示唆されている。両側腎盂周囲腫瘍については術前より存在し画像上も明らかな鑑別点を指摘しえないことから、多発性黄色肉芽腫であるかもしれない。しかし、骨盤内腫瘍はわずか2週間で約80%も縮小したのに対し、腎盂周囲腫瘍は術後3年の現在まだ残存しており、2つの腫瘍の属性が異なっている可能性がある。すなわち腎盂周囲腫瘍が術前より存在した後腹膜線維症の1症状であり、骨盤内腫瘍の退縮にともない線維症が顕性化した可能性も否定できない。後腹膜線維症が炎症性偽腫瘍の基礎疾患となったかどうかは不明だが、両者ともに腫瘍形成疾患であり経過上何らかの関係があるものと推測された。

結 語

後腹膜に発生した黄色肉芽腫型炎症性偽腫瘍の1例を報告した。腫瘍の自然消退を認めた興味ある症例であった。

本論文の要旨は、第15回日本泌尿器科学会埼玉地方会にて発表した。

文 献

- 1) Bahadori M and Liebow AA: Plasma cell granulomas of the lung. *Cancer* **31**: 191-208, 1973
- 2) Berardi RS, Lee SS and Chen HP: Inflammatory pseudotumor of the lung. *Surg Gynecol Obstet* **156**: 89-96, 1983
- 3) Johnston SJ, Beaver BL, Sun CJ, et al.: Inflammatory pseudotumor of the retroperitoneum. *Med J* **40**: 787-790, 1991
- 4) Coffin CM, Watterson J, Priest JR, et al.: Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). *Am J Surg Pathol* **19**: 859-872, 1995
- 5) 鈴木和浩, 三浦尚人, 植田 健, ほか: 後腹膜黄色肉芽腫の1例. *泌尿紀要* **38**: 315-318, 1992
- 6) 宮口大志, 松尾 学, 奥義安男, ほか: 後腹膜黄

- 色肉芽腫の1例. 泌尿紀要 **40**: 407-410, 1994
- 7) Sheinfeld A, Rubinow A, Steiner A, et al.: Retroperitoneal xanthogranuloma. *J Urol* **127**: 772-774, 1982
- 8) Eble JN, Rosenberg AE and Young RH: Retroperitoneal xanthogranuloma in an patient with Erdheim-Chester disease. *Am J Surg Pathol* **18**: 843-848, 1994
- 9) McCall IW and Woo-Ming M: The radiological appearances of plasma cell granuloma of the lung. *Clin Radiol* **29**: 145-150, 1979
- 10) Day DL and Dehner LP: Inflammatory pseudotumor of the mesentery and small intestine. *Pediatr Radiol* **16**: 210-215, 1986
- 11) Kahn LB: Retroperitoneal xanthogranuloma and xanthosarcoma (malignant fibrous xanthoma). *Cancer* **31**: 411-422, 1973
- 12) Meis JM and Enzinger FM: Inflammatory fibrosarcoma of the mesentery and retroperitoneum. *Am J Surg Pathol* **15**: 1146-1156, 1991
- 13) Mandelbaum I, Brashear RE and Hull MT: Surgical treatment and course of pulmonary pseudotumor (plasma cell granuloma). *J Thorac Cardiovasc Surg* **82**: 77-82, 1981
- 14) Simforoosh N, Basiri A and Shahsavari AH: Perivesical xanthogranulomatous pseudotumor. *J Urol* **137**: 977-978, 1987
- 15) Granulomatous inflammation. In: *Pathological Basis of Disease*. Edited by Cotran RS, Kumar V and Robbins SL. 5th Ed., pp. 80-82, W.B. Saunders, Philadelphia, 1992

(Received on June 5, 1997)

(Accepted on August 29, 1997)