

腎周囲脂肪織に発症した多発性炎症性偽腫瘍の1例

山本 勇人, 鈴木裕一郎, 杉山 尚樹, 岡本亜希子
 畠山 真吾, 岩渕 郁哉, 米山 高弘, 古家 琢也
 橋本 安弘, 百瀬 昭志, 神村 典孝, 大山 力
 弘前大学大学院医学研究科泌尿器科学講座

MULTIPLE INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR OF THE PARANEPHRIC FAT

Hayato YAMAMOTO, Yuichiro SUZUKI, Naoki SUGIYAMA, Akiko OKAMOTO,
 Shingo HATAKEYAMA, Ikuya IWABUCHI, Takahiro YONEYAMA, Takuya KOIE,
 Yasuhiro HASHIMOTO, Akishi MOMOSE, Noritaka KAMIMURA and Chikara OHYAMA
The Department of Urology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

A 57-year-old man was referred to our hospital because of a paranephric tumor detected by preoperative computed tomography (CT) for the ascending colon carcinoma. Since the paranephric tumor was small, surgical treatment was performed only for the colon carcinoma. The follow-up CT showed increase in size and number of paranephric tumor masses. It was suspected to be a soft tissue malignant tumor. Left radical nephrectomy was performed. Pathological findings revealed inflammatory pseudotumor of the paranephric fat. To our knowledge, this is the 4th case with inflammatory pseudotumor of the paranephric fat. (Hinyokika Kyo 55 : 757-759, 2009)

Key words : Inflammatory pseudotumor, Kidney

緒 言

炎症性偽腫瘍は紡錘細胞や膠原線維, リンパ球, 形質細胞などで構成させる疾患で, 主に肺に発生することが知られている¹⁾. 尿路生殖器系では膀胱に好発するとされるが, 腎周囲の発症は世界で3例の報告をみるにすぎず, いずれも孤発例である^{2,3)}.

今回われわれは, 腎周囲脂肪織に発生した多発性炎症性偽腫瘍を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する.

症 例

患者 : 57歳, 男性

主訴 : 左腎周囲の偶発腫瘍

家族歴 : 兄, 胃癌

既往歴 : 30歳, 高血圧. 57歳, 結腸癌, 糖尿病.

現病歴 : 2007年7月, 検診にて便潜血指摘. 精査にて上行結腸癌の診断を得た. この際の術前CTにて左腎周囲の腫瘍を指摘され, 当科紹介となった (Fig. 1A). 腫瘍径が小さかったため経過観察としたが, 5ヵ月後のCTにて腫瘍の増大傾向と左腎後面に新病変の出現を認めたため (Fig. 1B, C), 2008年1月9日手術目的に当科入院となった.

入院時現症 : 身長 164.2 cm, 体重 73.0 kg, 血圧 118/68 mmHg, 脈拍60回/分, 整. 腎は触知しなかった.

入院時検査成績 : 末梢血検査では異常は認めなかった. 血液生化学検査では, 空腹時血糖が 121 mg/dl と軽度高値を認めるのみで, 炎症反応は認めなかった. 尿検査に異常は認めなかった.

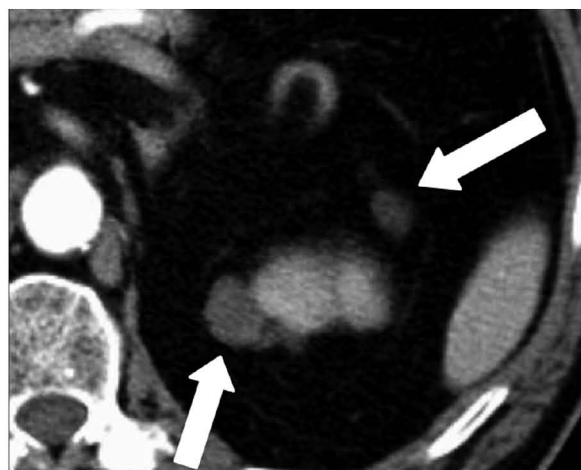
画像所見 : 当科紹介時の腹部CTでは, 左腎上極に接して軽度造影効果を認める径 2 cm と 1 cm の腫瘍を2個認めた (Fig. 1A). 5ヵ月後径 2 cm の腫瘍は 3 cm に増大し, 腎中極背側にも同様の腫瘍を認めた (Fig. 1B, C). その他の臓器に異常は認めなかった. 腹部 magnetic resonance imaging (MRI) では, 腎と等信号の腫瘍を左腎上極および周囲の脂肪織に3個認めた.

腫瘍が増大し, さらに数も増加していることより, 腎周囲脂肪織より発生した肉腫あるいは腎被膜より発生した悪性線維性組織球腫などの悪性腫瘍の診断の下, 2008年1月17日根治的左腎摘除術を施行した.

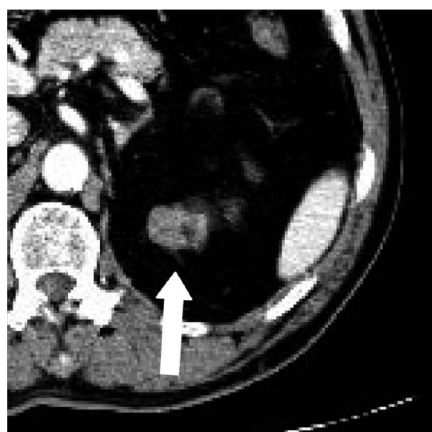
手術所見 : 全身麻酔下, 左肋骨弓下横切開にて手術を施行した. 左腎および周囲脂肪織を一塊に摘出し得た. 手術時間は1時間49分, 出血量は 200 ml であった.

肉眼的所見 : 腎上極付近の脂肪織に, 最大径 2.5 × 2.0 cm の, 表面平滑で硬い腫瘍を数個認めた. 出血・壊死などは認めなかった (Fig. 2).

病理組織学的所見 : ヘマトキシリン&エオジン染色 (HE) では, 線維芽細胞, 硝子化を示す膠原繊維が密に錯綜し, lymphoid follicle を多数形成しており, 形質



A



B



C

Fig. 1. A: Enhanced computed tomography (CT) showed tumors with weak enhancement in paranephric fat. B: Five months later, the tumor mass became larger. C: A new lesion was detected on the posterior surface of the left kidney.

細胞を主体とする炎症も認めた (Fig. 3A, B). 腫瘍を3個認め、いずれも被膜形成しておらず、形質細胞の周囲脂肪組織への浸潤を認めたが、腎実質への浸潤は認めなかった。

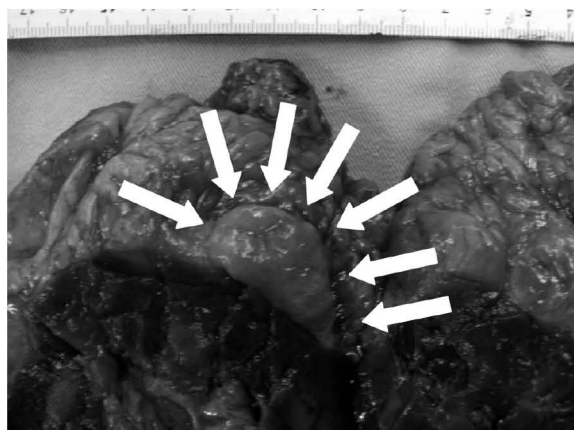
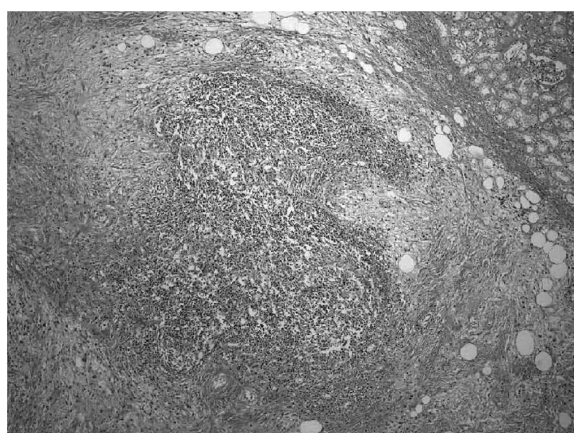
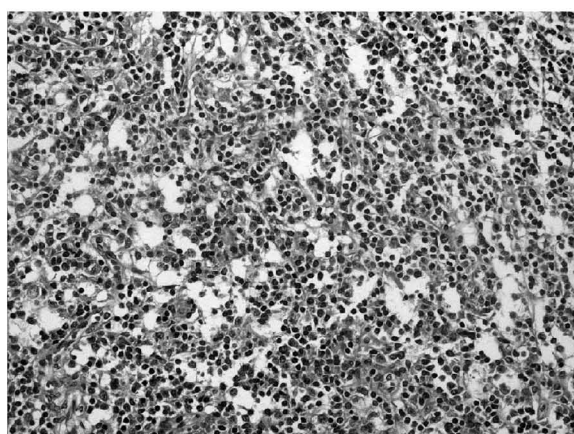


Fig. 2. Macroscopic appearance of cut-surface showing hard and smooth tumor in paranephric fat (arrows).



A



B

Fig. 3. A: Histopathological examination revealed inflammatory myofibroblastic tumor (HE stain; $\times 40$). B: The tumor consisted of hyaline scarring collagenic fiber and plasma cells (HE stain; $\times 200$).

免疫組織学的所見: α -smooth muscle actin (SMA), デスミン, CD34, c-kit は陰性であった。

以上より、腎周囲脂肪組織に発生した炎症性偽腫瘍と診断した。

術後経過良好で2008年1月29日退院となった。2009年5月現在再発を認めず、また血液生化学検査にて炎症反応も認めていない。

考 察

炎症性偽腫瘍 inflammatory pseudotumor (IPT) は、紡錘細胞や膠原線維、リンパ球、形質細胞などの浸潤によって腫瘍を形成する炎症性の非腫瘍性疾患である。この病変の多くが筋線維芽細胞を主な構成細胞としていることから、近年炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 inflammatory myofibroblastic tumor と呼ばれるようになった⁴⁾。同義語として形質細胞性肉芽腫 plasma cell granuloma, 黄色腫状偽腫瘍 xanthomatous pseudotumor などがある⁶⁾。

IPT は主に肺に発生するが、稀に肺外にも発生する。尿路系では膀胱に最も多く発生するが(9.5%)¹⁾、腎周囲脂肪組織発生例はきわめて稀で、われわれが調べた限りでは世界で3例の報告をみるにすぎず、いずれも孤発例である^{2,3)}。

本疾患は炎症の修復過程で発症すると考えられており、感染を契機に Interleukin (IL)-1 β , IL-6 などのサイトカインが炎症細胞や内皮細胞、線維芽細胞に作用し、腫瘍の発生、進展に関与している可能性があるとの報告が多い⁵⁾。今回上行結腸癌の手術侵襲や創傷治療の過程で体内のサイトカインが増加し、IPT の腫瘍細胞に作用し IPT の増大に関与したのかもしれない。

病理組織学的には、線維芽細胞、あるいは筋線維芽細胞様紡錘形細胞と種々の炎症細胞で主に構成されており、① fibrohistiocytic subtype と、② plasma cell granuloma subtype にわけられている⁶⁾。前者は紡錘形細胞が索状に配列し、リンパ球や形質細胞の浸潤を認める。後者は紡錘形細胞の間にリンパ球や形質細胞の浸潤が目立ち、それらがリンパ濾胞や Russell 小体を形成していることもある。どちらもほぼすべての症例において紡錘形細胞がピメンチンおよび SMA に陽性であり、またデスミン陽性細胞を認めることも少なくない⁵⁾。また anaplastic lymphoma kinase (ALK) が IPT で異常発現している例もある⁷⁾。本症例では、これらの抗体に陰性であったが、組織学的に炎症性細胞が主体であり、また腫瘍を形成していたことから plasma cell granuloma subtype に属する IPT と診断した。

画像診断で腎周囲軟部組織悪性腫瘍と鑑別することは困難とされており^{2,3)}、これまでに報告された3例

はすべて、摘出標本で診断されている。

IPT の治療法としては、局所再発率が約5~25%と報告されており⁵⁾、外科的切除が第一選択と考えられている¹⁾。なかには副腎皮質ステロイド投与により縮小する症例も報告されている⁷⁾。また腎機能低下症例に対して腫瘍を核出し腎を温存する方法も考えられるが、どちらも生検で確定診断がついた症例がその適応と考えられる。本症例は炎症所見がないにもかかわらず、短期間に急激な腫瘍の増大を認め、悪性腫瘍の可能性が高いため、根治的な腎摘除術の適応と考えられた。

結 語

腎周囲に発生した多発性炎症性偽腫瘍の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Coffin CM, Watterson 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
- 2) Kapusta LR, Weiss MA, Ramsay J, et al.: Inflammatory myoblastic tumors of the kidney. *Am J Surg Pathol* **27**: 658-666, 2003
- 3) 多武保光宏, 近藤秀明, 北内誉敬, ほか: 後腹膜炎症性 myofibroblastic tumor の1例. *泌尿紀要* **49**: 273-276, 2003
- 4) Coffin CM, Humphery PA and Dehner LP: Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor: a clinical and pathological survey. *Semin Diagn Pathol* **15**: 85-101, 1998
- 5) 久岡正典, 橋本 洋: 炎症性筋線維芽細胞性腫瘍. *病理と臨* **21**: 413-418, 2003
- 6) Matsubara O, TanLiu NS, Kenney RM, et al.: Inflammatory pseudotumors of lung: progression from organizing pneumonia to fibrous histiocytoma or to plasma cell granuloma in 32 cases. *Hum pathol* **19**: 807-814, 1988
- 7) Coffin CM, Patel A, Perkins S, et al.: ALK1 and p80 expression and chromosomal rearrangements involving 2p23 in inflammatory myofibroblastic tumor. *Mod Pathol* **14**: 569-576, 2001

(Received on May 29, 2009)

(Accepted on July 10, 2009)