

後腹膜マラコプラキアの1例

名古屋市立大学医学部泌尿器科学教室（主任：大田黒和生教授）

平 尾 憲 昭
上 田 公 介
加 藤 次 朗
渡 辺 秀 輝

A CASE OF RETROPERITONEAL MALAKOPLAKIA

Noriaki HIRAO, Kousuke UEDA, Jiro KATO
and Hideki WATANABE*From the Department of Urology, Nagoya City University Medical School, Nagoya, Japan*
(Director: Prof. K. Ohtaguro)

A case of retroperitoneal malakoplakia is reported. A 50-year-old female was admitted with the chief complaint of right flank pain. Intravenous pyelography, computed tomography, selective iliac arteriography and abdominal echography revealed right pararenal abscess and the right renal tumor suspected. About one liter of yellowish fluid was drained from the retroperitoneal space, but no right renal tumor was found. Pathological diagnosis was retroperitoneal malakoplakia postoperatively. This is assumed to be the second case of retroperitoneal malakoplakia in Japan.

Key words: Retroperitoneal malakoplakia, Pararenal abscess

緒 言

マラコプラキア (malakoplakia) は, Michaelis および Gutmann¹⁾ により1902年に報告され, von Hansemann²⁾ によって1903年に命名された疾患である. 本症は病理組織学的に Michaelis-Gutmann 小体 (以下 M-G 小体と略す) を有する組織球の存在を特徴とする肉芽腫性炎症である.

今回われわれは, 後腹膜マラコプラキアの1例を経験したので, ここに若干の文献の考察を加えて報告する.

症 例

患者 50歳, 女性

初診 1981年5月8日

主訴 右側腹部痛

既往歴・家族歴 特記すべきことなし

現病歴 1981年4月中旬より右側腹部痛が出現し, 4月25日に某医を受診した. 点滴静注腎盂造影 (以下

DIP と略す) にて右腎の腫大および右腎盂像の異常を指摘され当科に紹介された. DIP から右腎腫瘍を疑い, 1981年5月8日精査のため当科入院となる.

入院時現症 身長 147cm, 体重 54 kg, 栄養状態良好で, 血圧136/70 mmHg, 脈拍80回/分, 体温 36.4°C, 眼瞼・眼球結膜軽度貧血状, 胸部には異常所見を認めなかったが, 右側腹部に超手拳大で弾性硬, わずかに呼吸性移動があり, 圧痛のある腫瘍を触知した. そのほか, 外性器, 下肢などに異常を認めなかった.

入院時一般検査成績 心電図: 異常を認めず. 末梢血: 白血球数 11,400/mm³, 赤血球数 353×10⁴/mm³, Hb 10.1g/dl, Ht 31.3%, 血小板数 24.8×10⁴/mm³. 血沈: 1時間値 80 mm, 2時間値 130 mm. 血清 CRP (1+). 血液生化学的検査: Na 140 mEq/l, K 3.7 mEq/l, Cl 105 mEq/l, Ca 4.6 mEq/l, P 3.7 mEq/l, BUN 18 mg/dl, CRE 0.9 mg/dl, U.A. 4.6 mg/dl, T.P. 6.8 g/dl, GOT 10 mU/ml, GPT 5 mU/ml, Alp 79 mU/ml, LDH 195 mU/ml, γ -GTP/0 mU/ml, ChoE 348 mU/ml. タンパク分画: Alb 55.6%, α_1 3.7%, α_2

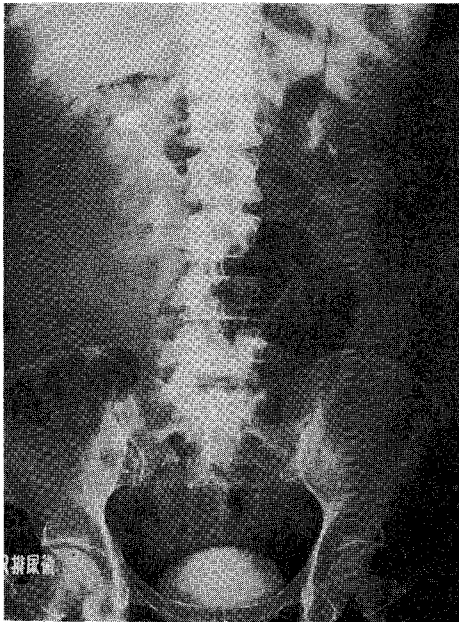


Fig. 1. Intravenous pyelography shows space occupied shadow of right kidney



Fig. 2. Angiogram shows avascular area of right kidney

15.3%, β 11.0%, γ 14.2%. 免疫グロブリン: IgG 1,789 mg/dl, IgA 226 mg/dl, IgM 176 mg/dl. 尿所見: 肉眼的には黄色清澄, 蛋白(-), 糖(-), 尿沈渣: 赤血球(-), 白血球 0~1 個/400 $\times$, 上皮細胞(-), 細菌(-), 一般細菌培養(-), 結核菌培養(-). 尿細胞診: 異型細胞を認めず.

レ線学的検査 排泄性腎盂造影 (以下 IVP と略す) 像にて左腎には異常を認めなかったが, 右下腎杯の描出不良, および上, 中腎杯の圧排所見を認めた. 両側尿管および膀胱は正常であった (Fig. 1). 選択的右腎動脈造影像では, 右腎下極血管影の圧排所見を認め, 占拠性病変の存在を疑った (Fig. 2). 腹部 CT 像にて右腎は高度に腹側へ圧排され, 背側部の輪郭は不整で, 右腎背側に膿瘍を疑わせる所見を認めた (Fig. 3). また, 腹部超音波検査にて右腎周囲膿瘍を疑わせる所見を認めた.

以上の所見により, 右腎周囲膿瘍および右腎腫瘍疑いの診断にて1981年5月26日右腎摘出目的にて手術を施行した.

手術所見 全身麻酔下, 右腎摘位にて, 右腰部斜切開をおき手術を進めたが, 腎周囲筋膜は腹横筋と広範に癒着しており, 腎周囲筋膜を開くと総量約 1 l の黄緑色で強い臭気を伴う排液を認めた. 右腎は肝, 腹膜および腸骨周囲組織と強く癒着していたため, 腎摘

出は困難であった. 後腹膜腔を洗浄し, ゲンタシン 60 mg を散布して手術を終了した.

排液検査 一般細菌培養にて *E. coli* 10⁶ 個/ml を認めたが, 細胞診, および結核菌培養は陰性であった.

病理組織学的検査 腎周囲脂肪組織標本にて脂肪組織内に高度の線維化を認め, 組織球を多数認めた. リンパ球の浸潤や多核異型巨細胞も存在し, また組織球の胞体内には多数の円形で塩基好性の封入体形成がめだち, あきらかな層状構造のみられるものも存在した (Fig. 4). この封入体は PAS 染色陽性で, 中心部および外周がとくに強く染まり, 中間帯が淡く, いわゆる bird eyelike な所見を呈した (Fig. 5). また von Kossa 染色も陽性で均一に濃染した (Fig. 6). これにより M-G 小体と確認し, マラコプラキアと診断した.

術後経過 術後10日目頃までドレーンより多量の排膿を認め, また創部からも排膿を認めたため, 一時創部を哆開させ排膿につとめた. 術後14日目頃より排膿量が減少し, 創部感染も消失したため, 1981年7月3日創部再縫合を施行した. また術後48日目の IVP にて右腎盂像は正常化した (Fig. 7). 病理診断確定後より化学療法を開始し, 1981年7月14日に退院した. 現在外来にて経過観察中であるが, 再発を認めていない.

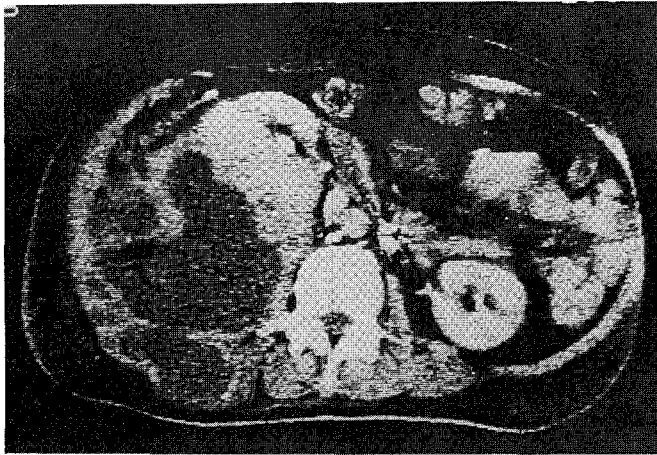


Fig. 3. Computed tomography demonstrates low density area among right kidney and its irregular margin

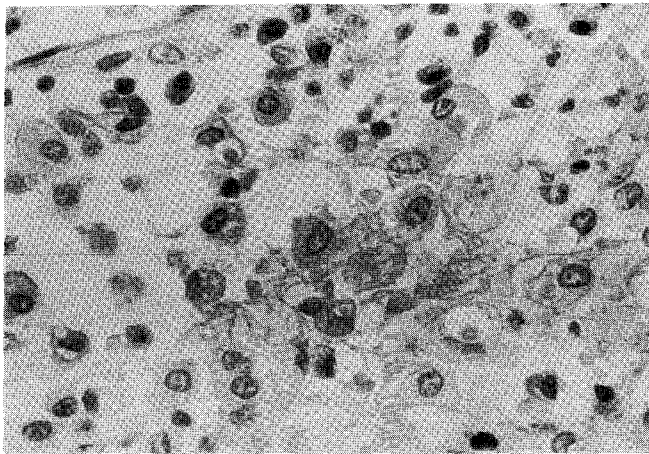


Fig. 4. Pararenal [fatty tissue; Foam cells composed of basophilic inclusion bodies. H & E, reduced from $\times 200$

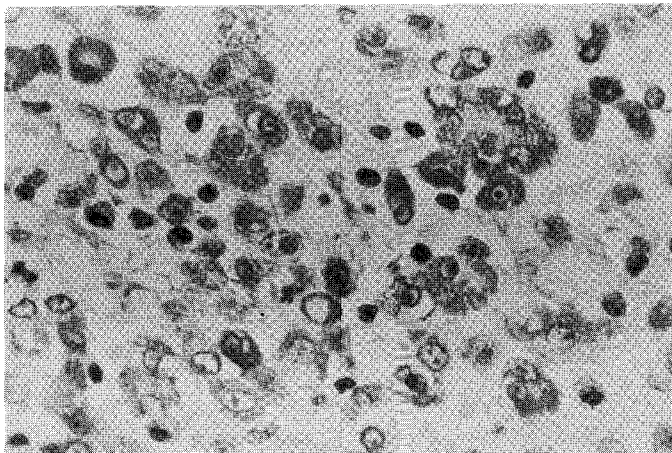


Fig. 5. PAS positive inclusion bodies show bird eye like structure (M-G bodies). PAS stain, reduced from $\times 200$

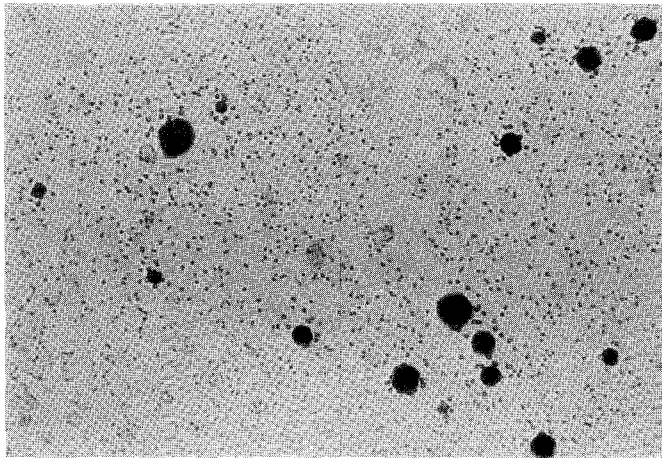


Fig. 6. Von Kossa staining shows M-G bodies reduced from $\times 200$

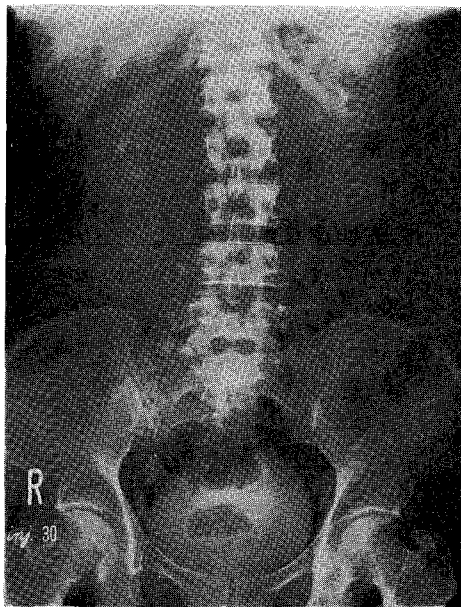


Fig. 7. Postoperative intravenous pyelography shows no deformity of right kidney

考 察

malakoplakia は1902年に Michaelis および Gutmann によりはじめて報告され、1903年に von Hansmann によって命名された疾患である。本症は肉眼的に柔らかい結節斑形成に特徴があり、ギリシア語の malakos (soft) および plakion (plaque) に由来するといわれる。

1981年 Michael³⁾ および William³⁾ によれば、1902年の Michaelis らの報告以来現在までに198例が報告されている。そのうち153例について集計している。

それによると、発生部位に関しては、153例中 尿路系が58%であり、膀胱が40%、尿管11%、腎盂10%、また腎盂尿管移行部2%、尿道2%である。そのほかの部位としては、腎実質16%、精巣12%、後腹膜12%、消化管12%である。さらに前立腺、精巣上体、小脳、脊椎、肺、心内膜、心弁膜、脾臓、脾臓、副腎、扁桃、皮膚、陰などの報告をみる。

性別に関しては、2:1と女性に多く、このうち膀胱に限ってみると4:1と女性に多くなる。年齢については、最年少6週から最高齢85歳まで広範であるが、ピークは50歳以上である。

本邦の報告例についてみると、1965年の佐々木ら⁴⁾の報告が第1例であり、現在までにわれわれが入手しえた39例に自験例1例を加えると40例の報告をみる (Table 1)。

発生部位では、膀胱34例、前立腺3例、後腹膜2例、胃1例である (Table 2)。性別では、男性8例、女性32例で、性比は1:4である。年齢については、27歳から88歳で、平均57.9歳である。そして、40歳から70歳までに好発している (Table 3)。

臨床症状としては、膀胱マラコプラキアについてみると、膀胱炎症状を主訴とするものが20例(50%)で、血尿が11例(27.5%)、そのほか尿路感染症1例、無症状で偶然発見されたものが2例であった。前立腺マラコプラキアでは熱発および排尿障害、胃マラコプラキアでは下痢および下腹部痛、後腹膜マラコプラキアでは側腹部痛を主訴として受診している。

診断についてみると、膀胱マラコプラキアで尿細胞診によって診断または推定可能であった3例⁵⁻⁷⁾を除外すると、すべて生検または手術による摘出標本から

Table 1. マラコプラキア本邦報告例

報告者	病変部	M-G 小 体	大腸菌
佐々木 (1965)	28女 膀胱	(-)	(+)
町 田 (1965)	53女 "	(+)	(+)
関 (1968)	57女 "	(+)	(+)
石 橋 (1970)	47女 "	(+)	(+)
"	53女 "	(+)	(+)
浜 田 (1973)	66男 "		
添 田 (1973)	41女 "	(+)	
小 幡 (1973)	53男 "	(-)	(+)
稲 葉 (1975)	88男 "	(-)	
土 屋 (1975)	71女 "	(+)	(+)
"	57女 "	(+)	(+)
河 野 (1975)	42女 "	(+)	(+)
橋 本 (1976)	72女 "	(+)	(-)
藤 田 (1976)	47男 "	(+)	(+)
池 田 (1977)	48女 "	(+)	(+)
中 林 (1978)	71女 胃	(+)	
中 島 (1978)	27女 膀胱	(+)	(-)
河 村 (1978)	53男 前立腺	(+)	
"	47男 "	(+)	
片 寄 (1979)	66女 膀胱	(+)	
小 林 (1979)	44女 "	(+)	(+)
"	74女 "	(+)	
河 内 (1979)	53女 "	(+)	(+)
雷 (1979)	58女 "	(+)	(+)
鷺 塚 (1979)	67女 "		
"	63女 "	(+)	
"	49男 "		
クモン (1979)	61女 後腹膜	(+)	(+)
小 林 (1980)	68女 膀胱	(+)	Klebsiella
大 滝 (1980)	67女 "	(+)	(+)
西 田 (1980)	41女 "	(+)	(+)
樹 鏡 (1981)	73女 "	(+)	(+)
三 浦 (1981)	65女 "	(+)	
"	60女 "	(+)	
陶 山 (1981)	72女 "	(+)	(+)
清 水 (1981)	55男 前立腺	(+)	
久 島 (1981)	71女 膀胱	(+)	
住 吉 (1981)	62女 "	(+)	
"	78女 "	(+)	
自験例	50女 後腹膜	(+)	(+)

Table 2. 発生部位

病変部	計
膀 胱	34
前 立 腺	3
後 腹 膜	2
胃	1
計	40

Table 3. 年齢分布および性別

	男性	女性	計
0~19	0	0	0
20~29	0	2	2
30~39	0	0	0
40~49	3	6	9
50~59	3	7	10
60~69	1	9	10
70~79	0	8	8
80~	1	0	1
計	8	32	40

Table 4. 大腸菌陽性例

	計
陽 性	20
陰 性	3
不 明	17
計	40

Table 5. M-G 小体陽性例

	計
陽 性	34
陰 性	3
不 明	3
計	40

なされている。また膀胱鏡的に特徴ある所見から推定しえた症例も少なからず認められた。

また本症の成因に関して大腸菌の関与が考えられているが、尿培養などにより大腸菌の感染が証明された症例は20例 (50%) である (Table 4)。確定診断はいずれも生検または手術摘出標本からなされているが、M-G 小体陽性例は40例中34例 (85%) であり、自験例でも陽性であった。3例は陰性であったが、残り3例は記載がなく不明である (Table 5)。

本症の成因に関しては、これまでになまぎまの説が唱えられているが、いまだ定説がない。Bleisch ら⁸⁾は、76%の症例に大腸菌属の細菌感染の存在を報告したが、Angelow⁹⁾、Gibson¹⁰⁾は大腸菌による感染が成因にもっとも大きな関与をしているのではないかと考えた。Low および Teplitz¹¹⁾、土屋¹²⁾は、電顕的になまぎまの程度に消化された大腸菌の存在を認めたことから、攻撃因子としては大腸菌による慢性の感染症が最大の要因であるとしている。さらに土屋は、M-G 小体の形成に関し、細菌の崩壊産物を含む phagolysosome の内容が融解し、やがてこれにリン酸カルシウムや鉄などが沈着して形成されると述べている。

いっぽう、Abdou ら¹³⁾は、宿主側の要因として、

単核球内の c-GMP が正常者に比して低く、殺菌能も低下していると報告している。大腸菌による尿路感染症の発症が高頻度であるのに対し、マラコプラキアの発生がきわめてまれであることから、その発生の基盤になんらかの免疫不全状態の存在が推定されている。また彼らは、c-GMP 上昇を刺激する cholinergic agonist (betanecol chloride) を培養された患者単核球に対して投与し、c-GMP の上昇と単核球機能の著明な改善を認め、また臨床的にも難治であったマラコプラキア患者に対して betanecol chloride 40 mg を 1 カ月間投与し病状の著明な改善を認めたと報告している。Zornow ら¹⁴⁾、久島ら¹⁵⁾も betanecol chloride が有効であった症例を報告している。以上のように本症の成因に関しては、大腸菌感染が主体をなし、そこになんらかの免疫不全状態が関与して発症すると考えられている。

結 語

本邦第2例目と思われる後腹膜マラコプラキアの1例を報告し、本邦報告例について文献的考察を加えた。

本論文の要旨は、日本泌尿器科学会第133回東海地方会において発表した。

文 献

- 1) Michaelis L and Gutmann C: Über Einschlüsse in Blasentumoren. *Z Klin Med* **47**: 208~215, 1902
- 2) von Hansemann: über Malakoplakie der Harnblase. *Virchows Arch path Anat* **173**: 302~309, 1903
- 3) Michael JS and William M: Malakoplakia: A study of the literature and current concepts of pathogenesis, diagnosis and treatment. *J Urol* **125**: 139~146, 1981
- 4) 佐々木 寿・外野正己: 膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **57**: 203~212, 1966
- 5) 河野通夫・徳川博武・尾関全彦: 尿の細胞診で診断した膀胱の Malakoplakia (軟板症) の1例. *日臨細胞会誌* **14**: 176~180, 1975
- 6) 大滝幸哉・ほか: 尿細胞診で推定し得た膀胱 Malakoplakia の1例. *西日泌尿* **42**: 443~447, 1979
- 7) 鷺塚 誠・ほか: 尿剥離細胞診による膀胱マラコプラキアの診断. *日泌尿会誌* **70**: 1041, 1979
- 8) Bleisch VR and Konikor NF: Malakoplakia of urinary bladder: Report of four cases and discussion of etiology. *Arch Path* **54**: 388~397, 1952
- 9) Angelov A: Malakoplakie der Harnableitenden Wege. *Zshr Urol* **55**: 371~376, 1962
- 10) Gibson TE et al: Malakoplakia: Report of a case, involving the bladder and one kidney and ureter. *Urol Int* **1**: 5~14, 1955
- 11) Lou TY and Teplitz C: Malakoplakia: pathogenesis and ultrastructural morphogenesis. *Hum path* **5**: 191~207, 1974
- 12) 土屋 哲: Vesical Malakoplakia の超微細構造および Michaelis-Gutmann 小体の形成機序について. *泌尿紀要* **21**: 487~505, 1975
- 13) Abdou NI et al: Malakoplakia: Evidence for monocyte lysosomal abnormality correctable by cholinergic agonist in vitro and in vivo. *New Eng J Med* **297**: 1413~1419, 1977
- 14) Zornow DH et al: Malakoplakia of the bladder: efficacy of bethanecol chloride therapy. *J Urol* **122**: 703~704, 1979
- 15) 久島貞一・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. *西日泌尿* **43**: 745~748, 1980
- 16) 米山達男・町田豊平・ほか: 膀胱に発生したマラコプラキアの1例. *臨床皮泌* **19**: 615~619, 1965
- 17) 関 孝雄: 膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **59**: 440, 1968
- 18) 石橋 晃・ほか: Malakoplakia の2例. *日泌尿会誌* **61**: 506, 1970
- 19) 浜田 実・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. *西日泌尿* **34**: 88, 1973
- 20) 添田朝樹・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **64**: 256~257, 1973
- 21) 小幡浩司・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **64**: 674~675, 1973
- 22) 佐々木 寿・ほか: 膀胱 Malakoplakia の症例追加. *日泌尿会誌* **65**: 256, 1974
- 23) 藤岡俊夫・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **66**: 115, 1975
- 24) 稲葉 穂・ほか: 高齢男子にみられた膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **66**: 301, 1975
- 25) 橋本博文・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. *日泌尿会誌* **67**: 222, 1976
- 26) 池田嘉文・西本和彦・五明田 学: 両側膀胱尿管

- 逆流現象を伴った膀胱マラコプラキアの1例. 西
日泌尿 **39**: 976~979, 1977
- 27) 藤田公生: Malakoplakia 症例. 日泌尿会誌 **67**:
998, 1976
- 28) Nakabayashi H et al: Malakoplakia of the
stomach. Arch path Lab Med **102**: 136~139,
1978
- 29) 徳江章彦・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **68**: 894, 1977
- 30) 中島慎一・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **69**: 1376, 1978
- 31) 片寄巧一・ほか: 膀胱マラコプラキアの1治験
例. 日泌尿会誌 **70**: 261, 1979
- 32) 河村信夫・ほか: 前立腺マラコプラキアの2例.
日泌尿会誌 **69**: 624, 1978
- 33) 小林誠一・ほか: マラコプラキアの2例—電顕的
観察を主として. 日病会誌 **68** (補冊): 51,
1979
- 34) 河内実世・中山 健: 膀胱マラコプラキアの1
例. 宮崎医会誌 **3**: 121~126, 1979
- 35) 雷 金溪・平田哲郎・熊沢浄一: 膀胱マラコプラ
キア. 西日泌尿 **41**: 779~784, 1979
- 36) 小林徹治・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **71**: 298, 1980
- 37) 井口厚司・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **71**: 985, 1980
- 38) 桒籙年清・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **72**: 111, 1981
- 39) 三浦一陽・ほか: 膀胱 malakoplakia の2例. 日
泌尿会誌 **72**: 111, 1981
- 40) 西田 亨・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **71**: 979~980, 1980
- 41) 陶山文三・ほか: 膀胱マラコプラキアの1例. 日
泌尿会誌 **72**: 782, 1981
- 42) 清水伸一・ほか: 前立腺マラコプラキアの1例.
日泌尿会誌 **72**: 117, 1981
- 43) 住吉義光・ほか: 膀胱マラコプラキアの2例. 日
泌尿会誌 **72**: 617, 1981
- 44) Kumon H et al: Malakoplakia of probable
retroperitoneal origin. Acta Med Okayama
33: 455~462, 1979

(1982年9月21日受付)