

膀胱に発生した Inflammatory myofibroblastic tumor の 1 例

林 哲也^{1*}, 阿部 豊文¹, 中山 治郎¹, 森 直樹¹
関井謙一郎¹, 吉岡 俊昭¹, 板谷 宏彬¹, 岸川 英史²

¹住友病院泌尿器科, ²兵庫県立西宮病院泌尿器科

A CASE OF INFLAMMATORY MYOFIBROBLASTIC TUMOR OF THE BLADDER

Tetsuya HAYASHI¹, Toyofumi ABE¹, Jiro NAKAYAMA¹, Naoki MORI¹,
Kennichiro SEKII¹, Toshiaki YOSHIOKA¹, Hiroaki ITATANI¹ and Hidefumi KISHIKAWA²

¹The Department of Urology, Sumitomo Hospital

²The Department of Urology, Hyogo Prefectural Nishinomiya Hospital

Here we report a rare case of inflammatory myofibroblastic tumor of the bladder. The patient was a 72-year-old man. We diagnosed this case preoperatively as urachal tumor from urine cytology, cystoscopy, and magnetic resonance imaging. We performed partial cystectomy. Histopathological examination revealed that the tumor was an inflammatory myofibroblastic tumor. To our knowledge, this is the 51st reported case of inflammatory myofibroblastic tumor of the bladder in Japan. He has been followed up for 13 months without any evidence of local recurrence.

(Hinyokika Kiyo 52 : 955-957, 2006)

Key words : Bladder, Inflammatory myofibroblastic tumor, Inflammatory pseudotumor

緒 言

Inflammatory myofibroblastic tumor は炎症細胞浸潤を背景とした炎症性筋線維芽細胞の増殖による比較的稀な良性腫瘍である。今回、われわれは膀胱に発生した inflammatory myofibroblastic tumor の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者：72歳，男性

主訴：なし

既往歴：職業性膀胱癌，白内障，糖尿病

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1976年，職業性膀胱癌に対して TUR-BT 施行。以後，外来で経過観察されていた。2004年11月，外来で行った膀胱鏡にて頂部から前壁にかけて隆起性病変を認め，同年12月加療目的にて当科入院となった。

検査成績：血液検査では LDH CRP が軽度高値であり，空腹時血糖が 124 mg/dl, HbA1c が 7.5% であった。検尿所見では特に異常はなく，尿細胞診はクラス I であった。膀胱鏡では頂部から前壁にかけて非乳頭状隆起性腫瘍および周囲粘膜の発赤，浮腫を認め

た。

画像所見：MRI では T2 強調画像で膀胱頂部から前壁に 1.7×2.0 cm の腫瘍を認め，造影 MRI でこの腫瘍は辺縁部中心に不均一に造影されていた (Fig. 1)。

画像・検査所見より尿膜管腫瘍を疑い，2004年12月，膀胱部分切除術を施行した。腫瘍断面は肉眼的には円形，白色調で，弾性硬であった。

病理組織所見：H & E 染色では，腫瘍周囲粘膜には好酸球，リンパ球，形質細胞などの炎症細胞浸潤を認め，腫瘍部位では紡錘形の腫瘍細胞の増生を認め，軽度の炎症所見を伴っていた。免疫染色では，CD34・c-kit・s-100 蛋白はそれぞれ陰性で， α smooth muscle actin (α SMA)，anaplastic large cell kinase (ALK) 陽性であった。

以上より，膀胱原発の inflammatory myofibroblastic tumor と診断され，追加治療は行わずに退院した。術後13カ月を経過した現在，再発は認めていない。

考 察

これまで炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor)，形質細胞性肉芽腫 (plasma cell granuloma) などと診断されていた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，1990年に Pettinato らがこのような病変を炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 (in-

* 現：箕面市立病院

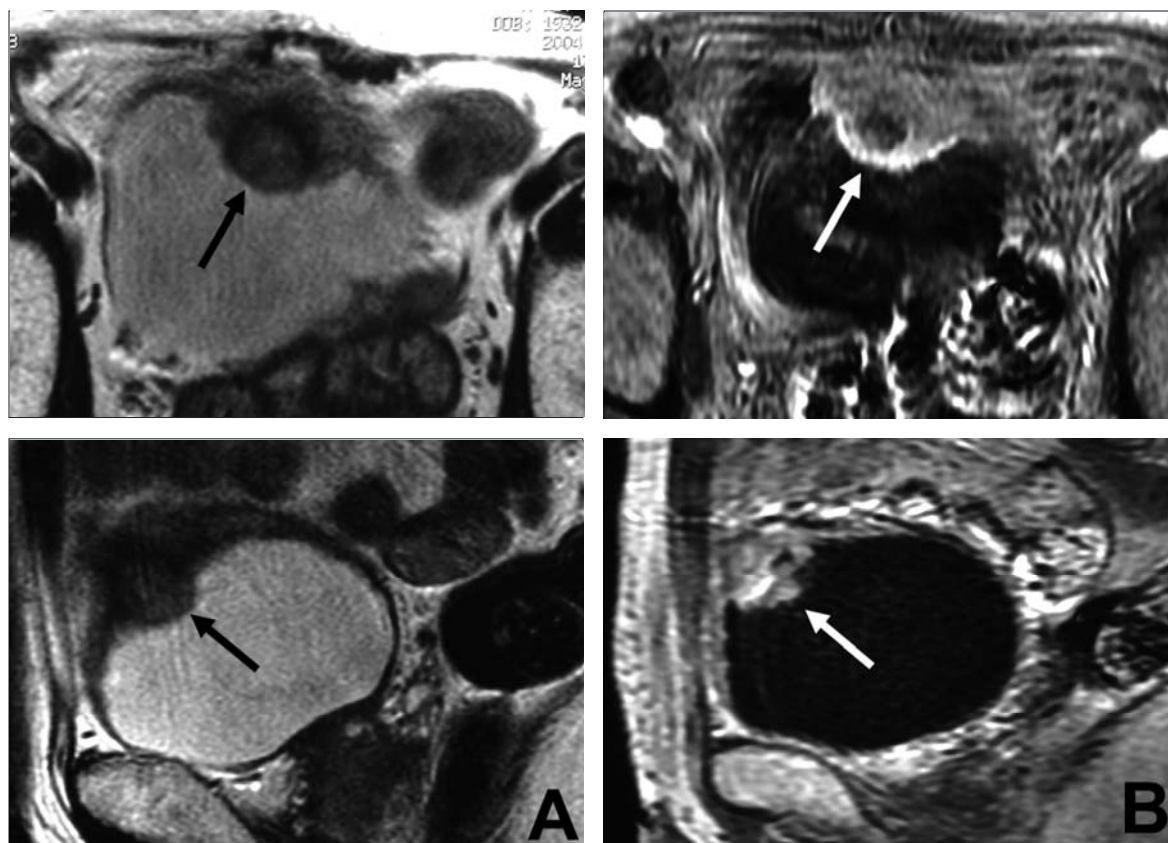


Fig. 1. A: MRI (axial, sagittal; T2 weighted) revealed tumor from dome to anterior wall of the bladder (arrow). B: MRI (axial, sagittal; contrast enhanced T1 weighted) shows revealed heterogeneous enhancement within the tumor (arrow).

inflammatory myofibroblastic tumor : 以下 IMT とする) と命名した¹⁾。IMT は、筋線維芽細胞の特徴を示す紡錘形細胞の増殖から成り、リンパ球や形質細胞を主とする炎症細胞浸潤を背景とした腫瘍性病変である。組織学的には、1 myxoid/vascular pattern, 2 compact spindle cell pattern, 3 hypocellular fibrous pattern の3つのパターンが存在するといわれている²⁾。原因は現在のところ明らかではないが、EBV・大腸菌などの感染、手術侵襲、外傷、糖尿病などの慢性疾患、免疫異常などとの関連が指摘されている。最近では IMT において interleukin (IL)-1 β や IL-6, IL-8, monocyte chemotactic protein-1 が過剰に産生されている事が示されており、感染を契機として炎症細胞や内皮細胞、線維芽細胞などから、もしくは紡錘形腫瘍細胞自身から産生・分泌されたサイトカインが作用し、IMT の発生や進展にかかわっているのではないかとされている³⁾。本症例においては、過去の手術歴・糖尿病の存在が本疾患発症と関係している可能性が挙げられる。

本疾患には特徴的な画像所見がなく、病理組織診断以外での診断は不可能である。組織学的には肉腫様癌・平滑筋肉腫などの悪性の紡錘形細胞腫瘍との鑑別が必要になる。近年、チロシンキナーゼ受容体蛋白の1つである anaplastic large cell kinase (ALK) が

IMT において異常発現している例が報告されており、膀胱 IMT では ALK 陽性率は33～89%と報告されている^{4,5)}。

IMT は、1937年に肺原発の症例で初めて報告されて以来、次第にあらゆる臓器・軟部組織に発生することがわかってきた⁴⁾。原発巣としては肺が最も多く、肺以外では腸間膜・大網などの腹腔内や後腹膜ないし骨盤腔内が好発部位である。好発年齢では、肺の IMT 症例は成人に好発し、肺外発生の IMT 症例は小児ないし若年成人に好発すると言われている。治療としては病変の完全な摘除を意図した外科的切除が一般的な治療法であり、腫瘍の完全摘除がなされた症例では良好な経過をたどっている。

1995年に Coffin らが米国における肺外発生 IMT 84例についてまとめ、うち53例について経過観察し、局所再発・死亡例について報告している⁶⁾。局所再発率は約25%であった。再発例としては腸間膜・大網に多くみられた。また報告例の中には稀ではあるが悪性転化を示した症例も認められた。膀胱発生例は7例(8.3%)であり、再発した症例は報告されていない。

本邦における IMT の膀胱発生例はわれわれが調べた限り、自験例をふくめ51例が報告されている⁷⁻¹⁰⁾。年齢は生後7日～82歳(平均38.9歳)と広範囲に認められ、性別では女性にやや多い。主訴として

は肉眼的血尿や膀胱炎様症状(排尿時痛・頻尿など)が多く, 発生部位としては頂部, 側壁に多いが, ほぼすべての部位より発生が認められている. 治療法としては外科的切除が大半を占めている. 中には生検による病理診断の結果が横紋筋肉腫であったため, 化学療法・放射線治療を施行するも効果が認められず, 最終的に外科的切除した腫瘍の病理診断が IMT であったというような症例も存在した^{11, 12)}.

外科的に腫瘍の完全切除がなされた症例では一般的に予後良好であること, また IMT と診断するためには病理組織学的な診断が必要であり, 診断的意味も含め外科的切除が妥当な治療といえる. 現在, 膀胱発生の IMT において, 外科的切除後は予後良好な経過を示している. しかし, 症例数もまだ少なく, 今後他の臓器発生例のように再発する可能性も十分考えられるため慎重な経過観察が必要である.

結 語

膀胱に発生した Inflammatory myofibroblastic tumor の 1 例について, 若干の文献的考察を加えて報告した.

文 献

- 1) Pettinato G, DeRosa N, Dehner LP, et al.: Inflammatory myofibroblastic tumor (plasma cell granuloma); clinicopathologic study of 20 cases with immunohistochemical and ultrastructural observation. *Am J Clin Pathol* **94**: 538-546, 1990
- 2) Coffin CM, Humphreys PA and Dehner LP: Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor: a clinical and pathological survey. *Semin Diagn Pathol* **15**: 85-101, 1998
- 3) 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
- 4) Freeman A, Geddes N, Munson P, et al.: Anaplastic lymphoma kinase (ALK1) staining and molecular analysis in inflammatory myofibroblastic tumors of the bladder: a preliminary clinicopathological study of nine cases and review of the literature. *Mod Pathol* **17**: 765-771, 2004
- 5) Chan JK, Cheuk W and Shimizu M: Anaplastic lymphoma kinase expression in inflammatory pseudotumors. *Am J Surg Pathol* **25**: 761-768, 2001
- 6) Coffin CM, Watterson J, Priest JR, et al.: Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor): a clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases. *Am J Surg Pathol* **19**: 859-872, 1995
- 7) 阪本祐一, 田中浩之, 川畑 岳: 3D-CT cystoscopy が診断に有用であった膀胱炎症性偽腫瘍の 1 例. *泌尿紀要* **49**: 587-590, 2003
- 8) 羽入修吾, 五十嵐俊彦, 福田剛明, ほか: 膀胱の炎症性偽腫瘍の 1 例. *泌尿器外科* **12**: 795-797, 1999
- 9) 門間哲雄, 齊藤史郎, 小野田 登: 腹膜浸潤様所見を呈した膀胱炎症性偽腫瘍. *泌尿器外科* **14**: 667-670, 2001
- 10) 関 英夫, 荒木博孝, 森谷鈴子, ほか: 膀胱炎症性偽腫瘍の 1 例. *泌尿紀要* **48**: 625-627, 2002
- 11) 堀田成紀, 水野和徳, 山崎治幸, ほか: 横紋筋肉腫との鑑別が困難であった膀胱原発 inflammatory myofibroblastic tumor の 8 カ月男児例. *小児がん* **38**: 48-51, 2001
- 12) 西川拓郎, 根路銘安仁, 田邊貴幸, ほか: 化学療法を行い臨床的効果に差を認めた炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 (inflammatory myofibroblastic tumor) の 2 症例. *小児がん* **40**: 623-628, 2003

(Received on March 6, 2006)

(Accepted on July 23, 2006)