

腎限局型 Castleman's disease の 1 例

洪 陽子¹, 金城 孝則¹, 野々村大地¹, 山本 致之¹
米田 傑¹, 野村 広徳¹, 鄭 則秀¹, 高田 晋吾¹
松宮 清美¹, 城光寺 龍², 辻本 正彦²

¹大阪警察病院泌尿器科, ²大阪警察病院病理診断科

CASTLEMAN'S DISEASE OF THE KIDNEY : A CASE REPORT

Yoko KOH¹, Takanori KINJO¹, Daichi NONOMURA¹, Yoshiyuki YAMAMOTO¹,
Suguru YONEDA¹, Hironori NOMURA¹, Norihide TEI¹, Shingo TAKADA¹,
Kiyomi MATSUMIYA¹, Ryo JOKOJI² and Masahiko TSUJIMOTO²

¹The Department of Urology, Osaka Police Hospital

²The Department of Pathology, Osaka Police Hospital

Castleman's disease is a rare disorder characterized by benign proliferation of lymphoid tissue. A 61-year-old man was referred to our department for a renal mass incidentally detected by magnetic resonance imaging. Computed tomography showed a 18×20×14 mm mass in the upper pole of the right kidney, which enhanced at the early phase and washed out at the late phase. On the diagnosis of renal cell carcinoma, laparoscopic partial nephrectomy was performed. Pathological examinations revealed a hyaline-vascular type of Castleman's disease confined to the kidney.

(Hinyokika Kiyo 60 : 129-132, 2014)

Key words : Castleman's disease, Kidney

緒 言

Castleman's disease は1954年に Castleman らが初めて報告したリンパ増殖性疾患である。好発部位は胸部、頭頸部、後腹膜であるが、腎原発は非常に稀である。われわれは、腎原発の Castleman's disease を1例経験したので、ここに報告する。

症 例

患 者 : 61歳, 男性

主 訴 : 偶発腫瘍

既往歴 : 胆嚢腺筋腫症, 大腸ポリープ

現病歴 : 人間ドックにて胆嚢腺筋腫症を指摘され, その精査のMRCPにて右腎上極に腫瘍を認めたため, 当科紹介となった。

現 症 : 身長 168.5 cm, 体重 80 kg, 胸腹部に特記所見を認めなかった。

検査所見 : 血液生化学検査, 尿検査所見に異常を認めなかった。

MRCP 所見 : T1 強調像にて腎実質よりも軽度低信

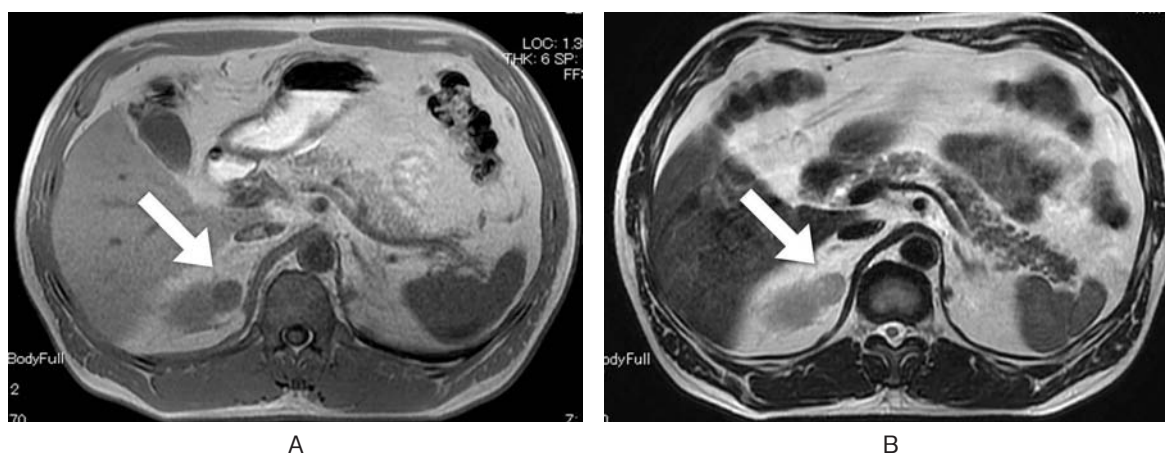


Fig. 1. MRI findings. (A) T1-weighted image shows a right renal mass with low intensity signal as well as renal parenchyma (arrow). (B) T2-weighted image shows a renal mass with the same intensity signal as renal parenchyma (arrow).

号な 17×16 mm の腫瘍を右腎上極に認めた。T2 強調像では腎実質と等信号、DWI では腎実質よりも高信

号であった。特異的な所見はなく、MRI での鑑別診断は困難であった (Fig. 1)。

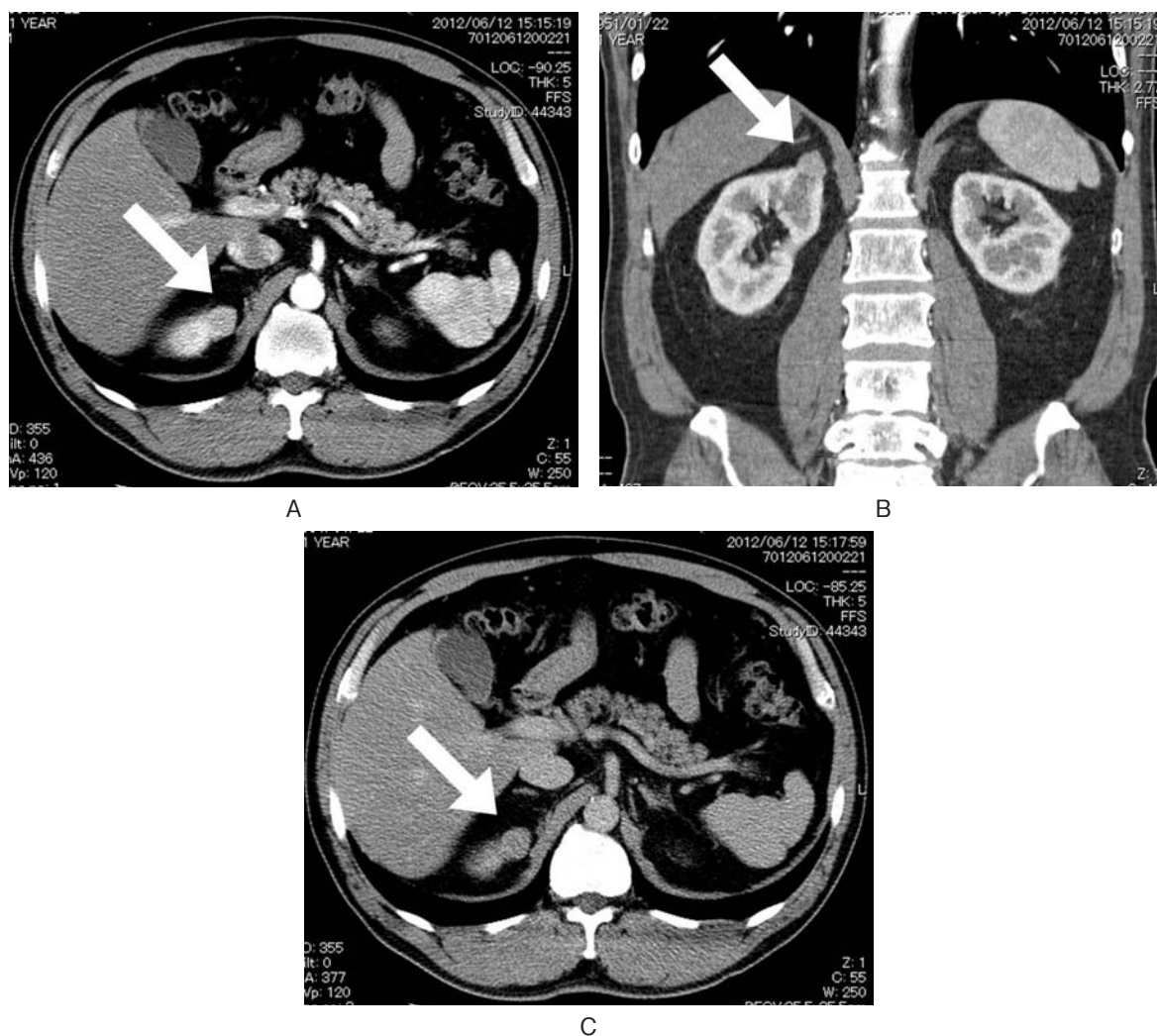


Fig. 2. CT findings. The dynamic CT showed a $18 \times 20 \times 14$ mm mass in the upper pole of the right kidney, which enhanced at the early phase (A, B) and washed out at the late phase (C) (arrow).

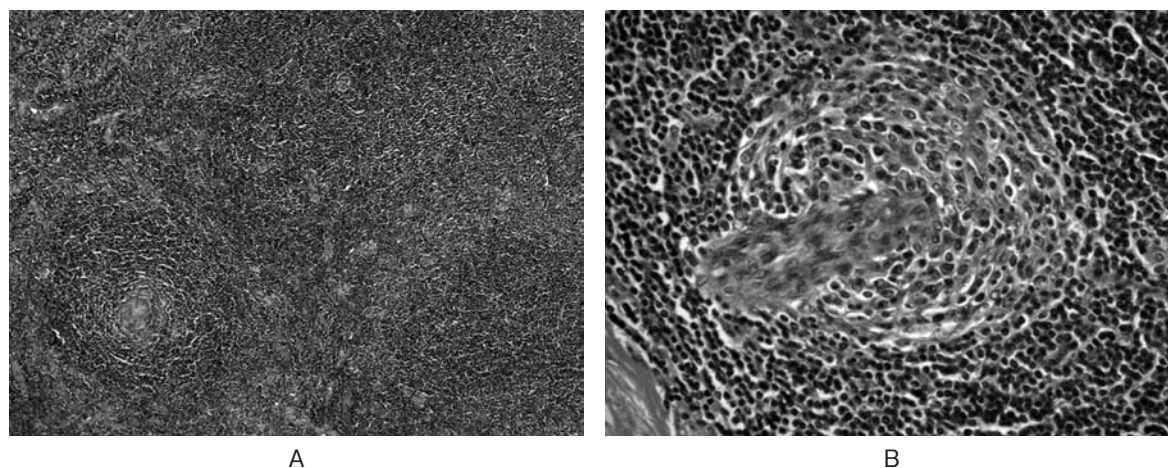


Fig. 3. Pathological findings. Lymphocytes make follicle-like structures which have germinal centers and between the follicles, there was an extensive capillary proliferation (B). Hyalinized vessels flow into the germinal centers (A) (hematoxylin and eosin staining, original magnification $\times 10$ (A), original magnification $\times 20$ (B)).

腹部造影 CT 所見: 右腎上極に 18×20×14 mm の腫瘍を認めた。早期相で腎実質より淡く造影され, 後期相で wash out を認めた (Fig. 2)。以上の所見より右腎細胞癌が疑われた。腎動脈分岐部レベルの下大静脈右側に小リンパ節を認めた。

入院後経過: 以上の所見より右腎細胞癌と診断し, 腹腔鏡下右腎部分切除術を施行した。

手術所見: 経腹膜到達法にて開始した。腎前面の癒合筋膜が腎周囲脂肪組織と強固に癒着しており比較的十二指腸寄りで剥離した。腎門部を展開後, 腫瘍確認のため腎周囲脂肪組織を腎から剥離するも強固に癒着しており, 剥離に難渋し, かなりの時間を要した。腎腫瘍を確認後, 腎部分切除を施行した。手術時間は 5 時間 57 分, 阻血時間は 33 分, 出血量は 500 ml であった。

病理学的所見: 正常腎とやや境界を不明瞭に異型の乏しいリンパ球が不規則な濾胞様構造を形成していた。濾胞様構造の中心には胚中心を認め, 硝子化を伴った血管が侵入していた。胚中心を取り囲むようにリンパ球が同心円状に配列し, 濾胞間には毛細血管を多数認めた (Fig. 3)。以上より, Castleman's disease, hyaline-vascular type と診断した。

術後経過: 術後 8 日目に経過良好で退院となった。術後の血液検査では, IL-6 は正常値であった。術後 3 カ月の CT にて再発を認めず, 術前の CT で指摘された小リンパ節は縮小し, 反応性腫大であったと考えられた。今後は, 半年ごとに経過観察する方針とした。

考 察

Castleman's disease は, 1956 年に Castleman らが初めて報告した非常に稀な良性のリンパ増殖性疾患である¹⁾。病理組織学的所見から hyaline vascular type (HV 型, 硝子血管型), plasma cell type (PC 型, 形質細胞型), mixed type に分類される。また, 臨床所見より限局型と多中心型とに分類され, 大きく臨床像が異なってくる。限局型は Castleman's disease の約 90% を占め, 組織型は HV 型が多数である。無症状なものも多く, 検査所見でも異常を認めない。予後は良好で, 外科的切除により完治が期待できる。一方, 多中心型は, 主に PC 型に認められ, 発熱や全身倦怠感, 体重減少などの全身症状や呼吸器症状, 消化器症状, 神経症状など多彩な症状を呈する。検査所見では, 貧血や CRP 増加, 赤沈亢進, 高 γ グロブリン血症, 高 IL-6 血症などを認め, 化学療法や抗 IL-6 受容体抗体による治療が行われるが, 予後は不良である。1992 年の浜田ら²⁾の報告によると, 好発部位は胸部が約 45.4%, 次いで頭頸部が 24.8%, 後腹膜が 11.0% である。腎原発の Castleman's disease は非常に稀で, われわれの調べた限りでは, 本症例を含め 11 報告³⁻¹²⁾ (13 症例) を認めるのみであり, これらについて検討した。

平均年齢は 62.2 歳で, 症状としては偶発腫瘍のものが 6 例, 有症状のものが 4 例であり, 3 例では詳細不明であった。有症状のものに関しては, 1 例が水腎症

Table 1. Summary of 13 cases of Castleman's disease of the kidney

症例	著者名	年齢	性別	主訴	検査所見	部位	術前診断	術式	組織型	転帰
1	Nolan ³⁾	62	男	腹痛, 感冒様症状	貧血, 血清総蛋白 $\uparrow$, γ グロブリン $\uparrow$, 顕微鏡的血尿	左腎盂	不明	生検 (laparo)	PC	不明
2	Feudis ⁴⁾	54	女	微熱, 盗汗, 倦怠感, 多関節痛	貧血, CRP $\uparrow$, γ グロブリン $\uparrow$	右実質	不明	右腎摘	HV	再発なし
3	長濱 ⁵⁾	79	男	微熱, 体重減少, 食欲不振	貧血, CRP・赤沈 $\uparrow$, γ グロブリン $\uparrow$, 顕微鏡的血尿	左腎門部	腎盂腫瘍, 腎実質性腫瘍	左腎摘 (open)	PC	再発なし, IL-6・ γ グロブリン高値は持続
4	Huang ⁶⁾	50	男	偶発腫瘍	肝酵素上昇	左腎中極	不明	左腎摘 (open)	HV	再発なし
5	Nishie ⁷⁾	65	女	不明	記載なし	両腎盂	不明	記載なし	PC	不明
6	Nishie ⁷⁾	70	男	不明	記載なし	両腎盂	不明	記載なし	PC	不明
7	Nishie ⁷⁾	73	男	不明	記載なし	左腎盂	不明	記載なし	Mixed	不明
8	Mah ⁸⁾	38	男	偶発腫瘍	特記事項なし	左実質	不明	左腎部切 (open)	HV	再発なし
9	Hatano ⁹⁾	70	男	偶発腫瘍	特記事項なし	左実質	腎細胞癌, リンパ腫	左腎部切 (open)	HV	再発なし
10	金子 ¹⁰⁾	59	女	偶発腫瘍	特記事項なし	左実質	腎細胞癌	左腎部切	HV	再発なし
11	志賀 ¹¹⁾	51	男	左水腎症	顕微鏡的血尿	左腎盂	尿路上皮癌, 悪性リンパ腫	左腎尿管全摘	Mixed	再発なし
12	ZHU ¹²⁾	76	女	偶発腫瘍	特記事項なし	左腎盂	不明	左腎摘	PC	再発なし
13	自験例	61	男	偶発腫瘍	特記事項なし	右実質	腎細胞癌	右腎部切 (laparo)	HV	再発なし

で、その他3例が微熱や体重減少、関節痛などの多中心型に特徴的なものであった。この3症例では貧血や高 γ グロブリン血症などの検査異常も伴っており多中心型の臨床像に矛盾しないものであった。ほとんどの症例では、腎細胞癌や悪性リンパ腫、腎盂腫瘍が疑われ、腎摘除術あるいは腎部分切除術（開腹が4例、腹腔鏡下は本症例のみ、その他は記載なし）が施行されている。組織型は、HV型が6例、PC型が5例、mixed typeが2例であった（Table 1）。まとめると多くは、偶発腫瘍を契機に発見され、腎腫瘍の診断の下、外科的切除術が施行されており、術前診断は非常に困難と考えられる（Table 1）。

Nishie ら⁷⁾は腎盂原発の Castleman's disease の画像所見について検討している。CT では腫瘍は腎実質よりわずかに高吸収域で、造影CTの早期相・後期相ではやや低吸収域でわずかに造影効果を示し、MRI ではT2強調像で腎皮質よりも低信号であると報告している。また、HV型とPC型とを比較すると、PC型は血管増生が少ない分、造影効果が弱い可能性を示唆している。本症例でも画像所見上は同様の傾向を示した。ただし、Castleman's disease に特異的な画像所見とはいえず、これとは異なる画像所見を示したとする症例報告もあり、術前の画像検査にて腎 Castleman's disease と診断することは非常に困難である。Castleman's disease の限局型では外科的切除が治療の第一選択となる。多中心型では、悪性疾患への移行例もあり予後不良とされており、術後にリンパ節・他臓器病変の評価や免疫グロブリン・サイトカインの測定などを行い、多中心型を鑑別することが重要と考えられる。また、完全切除後であっても長期間経過観察中に再発や転移を来す症例もある¹³⁾ため定期的な画像検査が必要と考えられた。

本症例では術中、腫瘍周囲の癒着が強く剥離に非常に難渋した。今回、調べた症例報告の中で術中所見について記載しているものはなかったが、骨盤内 Castleman's disease において腫瘍周囲との癒着が強く、完全切除できなかった症例や血管損傷を来した症例に関して、竹内ら¹⁴⁾が検討している。特にHV型では血管増生が強いという組織学的特徴を反映してか、血管や周囲組織との癒着が強い場合があり、術前の画像診断で栄養血管の走行や大血管と腫瘍との位置関係の正確な評価、術中の慎重な周囲血管・組織との剥離操作が必要とされる。

結 語

腎原発の Castleman's disease を1例経験した。腎腫

瘍性疾患の鑑別診断の1つと考えられた。術前に鑑別することは困難であるが、術後、病型などに応じて適切に経過観察することが重要であると考えられた。

文 献

- 1) Castleman B and Towne VW: Case records of the Massachusetts General Hospital, case 40011 (hyperplasia of mediastinal lymphnodes). *N Eng J Med* **250**: 26-30, 1954
- 2) 浜田史洋, 西山宜孝, 藤原恒太郎, ほか: 後縦隔発生 Castleman lymphoma の1例—本邦報告218例の検討—。日臨外医会誌 **53**: 2100-2103, 1992
- 3) Nolan RL, Banerjee A and Idikio H: Castleman's disease with vascular encasement and renal sinus involvement. *Urol Radiol* **10**: 173-175, 1988
- 4) De Feudis L, Caorta G, Sargiacomo R, et al.: Malattia di Castleman con localizzazione renale isolata: caso clinico. *Ann Ital Med Int* **13**: 117-120, 1998
- 5) 長濱寛二, 東 耕一郎, 眞田俊吾, ほか: 腎洞部病変から明らかとなった全身多発型 Castleman 病の1例。泌尿紀要 **46**: 95-99, 2000
- 6) Huang WJ, Chang YH and Chen KK: Castleman's disease of the kidney: a case report and literature review. *J Taiwan Urol Asso* **15**: 119-121, 2004
- 7) Nishie A, Yoshimitsu K, Irie H, et al.: Radiologic features of Castleman's disease occupying the renal sinus. *AJR* **181**: 1037-1040, 2003
- 8) Mah NA, Peretsman SJ, Teigland CM, et al.: Castleman disease of the hyaline-vascular type confined to the kidney. *Am J Clin Pathol* **127**: 465-468, 2007
- 9) Hatano K, Fujita S, Tsujimoto Y, et al.: Rare case of the hyaline vascular type of Castleman's disease of the kidney. *Int J Urol* **14**: 1098-1100, 2007
- 10) 金子智之, 小串哲生, 朝蔭裕之, ほか: 腎臓に限局した硝子血管型 Castleman 病の1例。日泌尿会誌 **99**: 597-600, 2008
- 11) 志賀淳治, 小泉和夫, 加藤正久, ほか: 腎盂 Castleman 病の1例。診断病理 **26**: 115-118, 2009
- 12) ZHU YC, HUANG Y, YAO J, et al.: A rare case of Castleman's disease of plasma cell type within kidney. *Chin Med J* **122**: 2396-2398, 2009
- 13) 牛尾達朗, 吉村邦彦, 児島 章, ほか: 初回切除術9年後に再燃をみた Castleman 病の1例。日胸疾患会誌 **32**: 1175-1179, 1994
- 14) 竹内康晴, 関戸哲利, 澤田喜友, ほか: 骨盤内に発生した硝子血管型 Castleman 病の1例。泌尿紀要 **58**: 569-573, 2012

(Received on August 21, 2013)
(Accepted on November 13, 2013)