

炎症性偽腫瘍を併発した後腹膜脂肪肉腫の1例

村上 薫, 柴崎 昇*, 濱田 彬弘
 千菊 敦士**, 岡所 広祐***, 澤田 篤郎
 川西 博晃, 奥村 和弘, 奥村 秀弘
 天理よろづ相談所病院泌尿器科

A CASE OF RETROPERITONEAL LIPOSARCOMA
WITH INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR

Kaoru MURAKAMI, Noboru SHIBASAKI, Akihiro HAMADA,
 Atsushi SENGU, Kosuke OKASHO, Atsuro SAWADA,
 Hiroaki KAWANISHI, Kazuhiro OKUMURA and Hidehiro OKUMURA
 The Department of Urology, Tenri Hospital

A 54-year-old man presented with pollakiuria and dysuria. Ultrasonography, computed tomography (CT), and magnetic resonance imaging (MRI) showed a retroperitoneal tumor 10 cm in diameter. Pathological examination of a transrectal biopsy specimen obtained from the patient revealed the presence of an inflammatory myofibroblastic tumor (IMT). The patient underwent surgical resection of the tumor. Histopathologically, the tumor was composed of 3 parts: the largest part was compatible with an inflammatory pseudotumor: the second part, well-differentiated liposarcoma: and the third part, a myxoid liposarcoma. He has been followed up for 14 months; but there was no evidence of local recurrence of the tumor. We believe that the inflammatory pseudotumor complicated in repairing the inflammation arising from the liposarcoma.

(Hinyokika Kyo 58 : 79-82, 2012)

Key words : Key words : Inflammatory pseudotumor, Liposarcoma, Retroperitoneal tumor

緒 言

炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) は、筋線維芽細胞ないし線維芽細胞の特徴を示す紡錘形細胞の増殖と、リンパ球や形質細胞を主とする炎症細胞の著明な浸潤から成る病変である¹⁾。今回われわれは経直腸的生検で炎症性偽腫瘍と診断され、腫瘍摘除術を行い、摘出標本の病理組織学的所見で脂肪肉腫と診断された1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 : 54歳, 男性

主訴 : 頻尿, 排尿困難

既往歴 : 腎結石, 左頸部嚢胞

家族歴 : 特記すべき事項なし

現病歴 : 2009年8月ごろより頻尿および排尿困難が出現し、次第に増悪するため、10月当院泌尿器科を受診した。腹部超音波検査および腹部CTを施行した

ところ、膀胱背側に径約10cmの内部不均一で、境界明瞭な分葉状の腫瘍を認めた。また、MRI (Fig. 1) では、腫瘍はT1強調像ではほぼ均一な低信号であり、T2強調像にて高信号を示す内部に隔壁を有する分葉状の腫瘍を認め、ガドリニウム造影では早期より増強効果が見られた。これらの所見から肉腫などの悪性疾患の可能性も考えられたため、診断目的にて超音波ガイド下に経直腸的腫瘍生検を施行した。また、PSAが4.61 ng/mlと高値であったため前立腺生検も同時に施行した。腫瘍部位4カ所、前立腺8カ所の生検を施行したところ、前立腺に悪性所見は認めなかったが、腫瘍部位からの生検では形質細胞やリンパ球などの炎症細胞浸潤を伴った紡錘形細胞の増殖を認めた。紡錘形細胞の密度は低く、核の異型性も乏しく、肉腫などの悪性所見は明らかではなかった。また、筋線維芽細胞のマーカーである α smooth muscle actin (α SMA) 染色陽性であり、炎症性偽腫瘍 (炎症性筋線維芽細胞性腫瘍) と診断した (Fig. 2)。腫瘍摘除術の目的で12月に当科入院となった。

入院時所見 :

現症 : 身長 177 cm, 体重 76 kg, BMI 24.2, 体温 36.3°C, 血圧 126/70 mmHg, 脈拍 70 回/分, 整, SpO₂ 98%

* 現 : 京都大学大学院医学研究科泌尿器科学教室

** 現 : 大津赤十字病院泌尿器科

*** 現 : 日本赤十字社和歌山医療センター

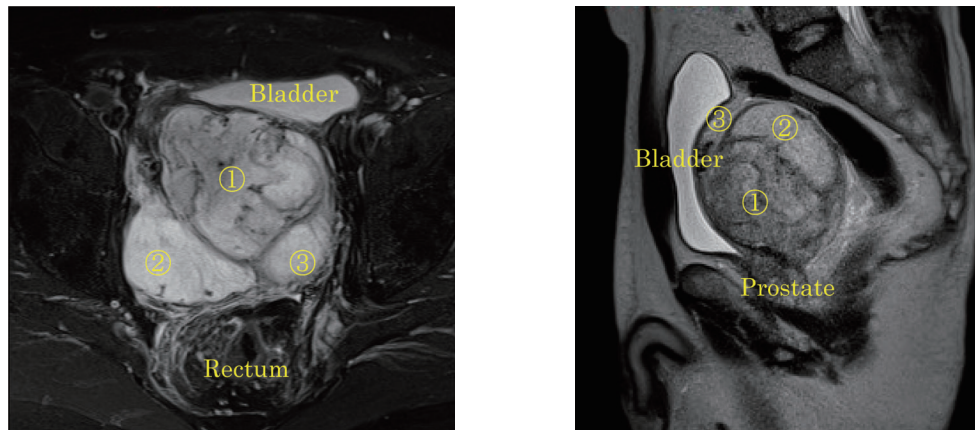


Fig. 1. MRI (T2 weighted image) shows a large multicystic tumor (10 cm in diameter) in the retroperitoneal space. The tumor was separated into three compartments (①-③).

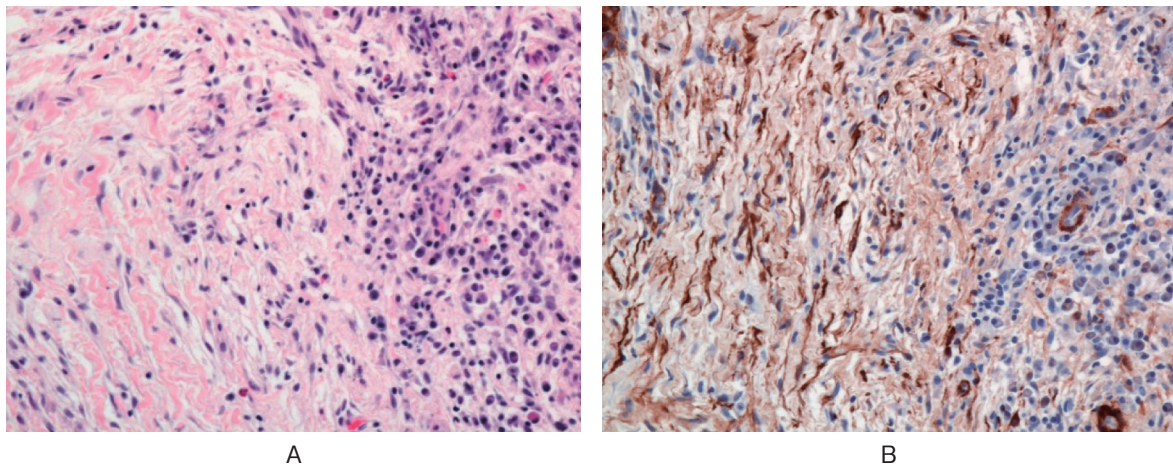


Fig. 2. Histopathological findings of the biopsy specimen revealed spindle-shaped cells (fibroblasts) and inflammatory cells (plasma cells and lymphocytes). A: (HE stain $\times 100$). B: (α SMA stain $\times 100$).

身体所見：直腸診，弾性硬の前立腺触知
 そのほか明らかな腫瘍は体表および直腸診で触知せず。

血液検査：CRP 0.9 mg/dl，そのほか特記すべき異常なし

入院後経過：下腹部正中切開にて腫瘍摘出術を施行した。術前病理診断にて明らかな悪性所見を認めなかったため，膀胱は温存する予定であったが，術中に腫瘍と膀胱の間に癒着を認めたため，膀胱筋層を一部合併切除した。そのほか直腸，前立腺，精嚢との癒着は認めず，温存可能であった。手術時間は4時間22分，出血量は1,350 gであった。

摘出標本の肉眼所見 (Fig. 3) では，腫瘍は，①黄白色の成分，②黄色で光沢があり粘液腫状の成分，③黄色で脂肪様の成分の3つの部分に分かれていた。①は本腫瘍の中で最大の部分であり，膀胱との癒着がみられた部位であった。炎症細胞浸潤を伴う紡錘形細胞の増殖を認め，免疫染色で α SMA 染色陽性であることから，術前診断と同様の，典型的な炎症性偽腫瘍であると考えられた (Fig. 4 ①)。②は粘液状基質の目立つ

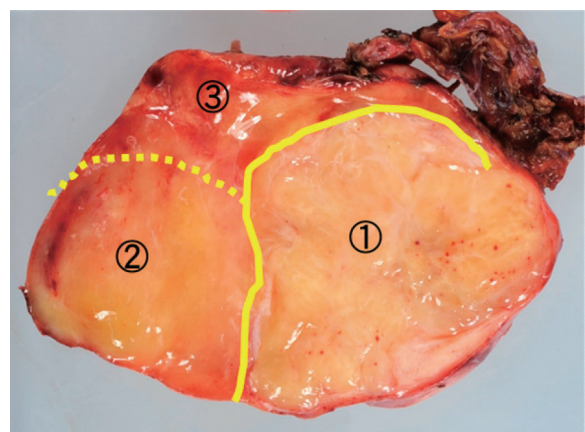


Fig. 3. Macroscopic findings of the tumor. The tumor was separated into three compartments (①-③).

背景に毛細血管網と脂肪芽細胞を認め，粘液型脂肪肉腫と診断した (Fig. 4 ②)。③は大小不同の脂肪細胞から構成され，脂肪芽細胞も認められることから高分化型脂肪肉腫と診断した (Fig. 4 ③)。②③いずれも，筋線維芽細胞マーカーである α SMA 染色陰性であり，

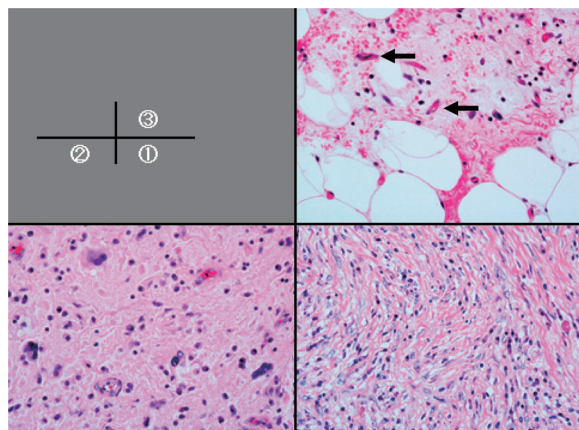


Fig. 4. Histopathological findings of the excised specimen. HE stain $\times 100$. ① The part of inflammatory pseudotumor. ② The part of liposarcoma (myxoid type). ③ The part of liposarcoma (well differentiated type). A few lipoblasts are found (arrow).

明らかに炎症性偽腫瘍とは異なっていた。これらの所見から、最終的に、炎症性偽腫瘍を伴った混合型脂肪肉腫（粘液型および高分化型の混合型）と診断した。術後1年9カ月経過したが、現在まで再発は認めていない。

考 察

炎症性偽腫瘍は、筋線維芽細胞ないし線維芽細胞の特徴を示す紡錘形細胞の増殖と、リンパ球や形質細胞を主とする炎症細胞の著明な浸潤から成る病変と定義されている¹⁾。しかし、その中には反応性病変から真の腫瘍まで複数の疾患単位が含まれている。橋本によると、炎症性偽腫瘍に含まれる病変としては、①筋線維芽細胞から成る真の腫瘍である炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 inflammatory myofibroblastic tumor (IMT)、②感染ないし炎症の修復機転における腫瘤形成、③活動性感染による炎症性偽腫瘍、④ Epstein-Barr virus (EBV) 関連炎症性偽腫瘍様濾胞樹状細胞性腫瘍、⑤上記のいずれとも断定できないものがあるとされる¹⁾。また、Qiu らによれば、診断には免疫染色が有効であるとの報告もみられる。特に、筋線維芽細胞のマーカーである calponin や α SMA, muscle-specific actin (MSA) や、線維芽細胞のマーカーである fibronectin が陽性となることが多く、診断の助けとなる²⁾。

自験例は脂肪肉腫と広範囲に接して炎症性偽腫瘍性病変を認めることから、上記 ②に相当する、脂肪肉腫の周囲に生じた炎症の修復機転により生じた炎症性偽腫瘍であると考えられた。後腹膜原発の炎症性偽腫瘍の報告はしばしば見られるものの^{3,4)}、悪性軟部腫瘍の周囲に生じた炎症性偽腫瘍は、本邦では榊井らによる後腹膜腺型悪性末梢神経鞘腫瘍の周囲に生じた炎症性偽腫瘍の1例の報告⁵⁾のみである。しかし悪性腫

瘍周囲には炎症細胞の浸潤が多くみられることから、炎症性偽腫瘍の背景には悪性腫瘍が存在する可能性もある。一般に炎症性偽腫瘍の治療法は腫瘍の摘出であり、後腹膜に生じた炎症性偽腫瘍に対しても腫瘍の外科的切除が基本である^{6,7)}。炎症由来の炎症性偽腫瘍では、炎症の原因を除去することが必要と考えられるが、場合によってはステロイド治療も選択肢の1つとされている⁸⁻¹⁰⁾。

一方、脂肪肉腫は大腿部や後腹膜に好発する悪性軟部腫瘍であるが、後腹膜腫瘍に占める割合は本邦では10~20%と言われ、後腹膜腫瘍の中で最多とされている^{11,12)}。組織型は、①高分化型、②粘液型、③多形型、④脱分化型、⑤混合型に分類され、高分化型および粘液型は完全切除された場合は比較的予後良好とされる¹³⁾。高分化型は脂肪成分を多く含むためCTでは腫瘍内に低吸収域が認められ、造影早期から不均一な造影効果があるとされ、MRIではT1強調像で内部不均一な低信号を示し、T2強調像で皮下脂肪と同等の高信号を呈するとされる。一方粘液型はムチンを含み脂肪成分は少ないためMRIではT1強調像で低信号、T2強調像で均一な高信号を呈するとされる¹⁴⁾。自験例においても、MRI画像から腫瘍は3つの部分に分けられており、高分化型脂肪肉腫と粘液型脂肪肉腫に矛盾しない所見が認められた (Fig. 1A)。脂肪肉腫の治療法は周囲臓器も含めた腫瘍の完全摘除である。また脂肪肉腫では再発が認められた場合においても外科的切除が基本であり、化学療法の有効性を示す報告¹⁵⁾や、放射線療法の有効性を示す報告¹⁶⁾も一部で見られるものの、一定のコンセンサスは得られていない。

自験例では、超音波ガイド下に4カ所の針生検を施行し炎症性偽腫瘍の診断を得たが、針生検の組織には脂肪肉腫の成分は含まれていなかったために術前診断に至らなかった。自験例は腫瘍サイズが大きく、かつ腫瘍が複数の成分から構成されていたのだが、各成分の生検を施行することにより、術前に脂肪肉腫の診断がついた可能性はある。また、自験例のように悪性腫瘍の周囲に炎症性偽腫瘍が生じることもあり、炎症性偽腫瘍と診断されても、背景に悪性疾患が存在する可能性を念頭に置く必要があると考えられる。なお自験例に関しては、脂肪肉腫として嚴重に術後経過観察を行っており、万一再発を認めた場合、追加切除術を施行する予定である。

結 語

今回われわれは、炎症性偽腫瘍を併発した脂肪肉腫の1例を経験した。術前診断にて炎症性偽腫瘍と診断された場合、IMTであるのか、悪性疾患や他の炎症性疾患を背景として生じた炎症性偽腫瘍であるのかを

十分に検討する必要があると考えられた。

本論文の要旨は、第212回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) 橋本 洋：炎症性偽腫瘍をどうとらえるか。病理と臨 **25**：418-420, 2007
- 2) Qiu X, Montgomery E, Sun B, et al.: Inflammatory myofibroblastic tumor and low-grade myofibroblastic sarcoma. *Hum Pathol* **39**: 846-856, 2008
- 3) 田村陽一, 湯村 寧, 桜本敏夫, ほか：後腹膜に発生した炎症性偽腫瘍（黄色肉芽腫）の1例。泌尿器外科 **17**：1101-1103, 2004
- 4) 多武保光宏, 近藤秀明, 北内誉敬, ほか：後腹膜 Inflammatory myofibroblastic tumor の1例。泌尿紀要 **49**：273-276, 2003
- 5) 梶井 真, 大隅信幸, 今本 敬, ほか：炎症性偽腫瘍（黄色肉芽腫）を伴った後腹膜腺型悪性末梢神経鞘腫瘍の1例。西日泌尿 **62**：521-525, 2000
- 6) Coffin CM, Waterson 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) Koirala R, Shakya VC, Agrawal CS, et al.: Retroperitoneal inflammatory myofibroblastic tumor. *Am J Surg* **199**: 17-19, 2010
- 8) 井上貴昭, 木下秀文, 堀越幹人, ほか：膀胱 Inflammatory myofibroblastic tumor の1例。泌尿紀要 **57**：141-145, 2011
- 9) Koea JB, Broadhurst GW, Rodgers MS, et al.: Inflammatory pseudotumor of the liver: demographics, diagnosis, and the case for nonoperative management. *J Am Coll Surg* **196**: 226-235, 2003
- 10) Schaeffer CJ, Minai OA, Sharma N, et al.: Inflammatory myofibroblastic tumor of the lung: recurrence after steroid treatment. *J Thorac Imaging* **23**: 191-193, 2008
- 11) 中島 登, 河村信夫, 松下一男, ほか：後腹膜脂肪肉腫の2例—症例報告ならびに本邦163例の統計的考察—。泌尿紀要 **33**：414-417, 1987
- 12) 遠近直成, 上地一平, 北村宗生, ほか：多彩な病理組織像を有する後腹膜脂肪肉腫の1例。外科治療 **100**：836-840, 2009
- 13) Singer S, Antoneacu CR, Riedel E, et al.: Histological subtype and margin of resection predict pattern of recurrence and survival for retroperitoneal liposarcoma. *Ann Surg* **238**: 358-370, 2003
- 14) Dooms GC, Hricak H, Solitto RA, et al.: Lipomatous tumors and tumors with fatty component: MRI imaging potential and comparison of MRI and CT results. *Radiology* **157**: 479-483, 1985
- 15) 遠藤 誠：脂肪肉腫に対する薬物療法。癌と化療 **37**：434-438, 2010
- 16) Binder SC, Katz B and Sheridan B: Retroperitoneal liposarcoma. *Ann Surg* **187**: 257-261, 1978

(Received on September 7, 2011)

(Accepted on October 31, 2011)