

腎盂に発生した炎症性偽腫瘍の1例

飯田 孝太¹, 細川 幸成¹, 伊丹 祥隆¹篠原 雅岳¹, 林 美樹¹, 藤本 清秀²¹多根総合病院泌尿器科, ²奈良県立医科大学泌尿器科学教室A CASE OF INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR
OCCURRING IN THE RENAL PELVISKota IIDA¹, Yukinari HOSOKAWA¹, Yoshitaka ITAMI¹,
Masatake SHINOHARA¹, Yoshiki HAYASHI¹ and Kiyohide FUJIMOTO²¹The Department of Urology, Tane General Hospital²The Department of Urology, Nara Medical University

Inflammatory pseudotumor most commonly involves the lung. However, inflammatory pseudotumor has been reported in various sites in the abdomen, including the kidneys, retroperitoneum and urinary tract. We present a rare case of pathologically proven inflammatory pseudotumor in the renal pelvis. A 45-year-old woman was referred to our hospital with gross hematuria. Computed tomography demonstrated a mass around the right renal pelvocalyceal system suggestive of cystic renal cell carcinoma. Retrograde-pyelography was done. Pelvic urine cytology was class III. The possibility of urothelial carcinoma could not be denied. Retroperitoneoscopic nephroureterectomy with open bladder cuff excision was performed. The histological examination revealed an inflammatory pseudotumor. She showed no evidence of disease 44 months after the operation.

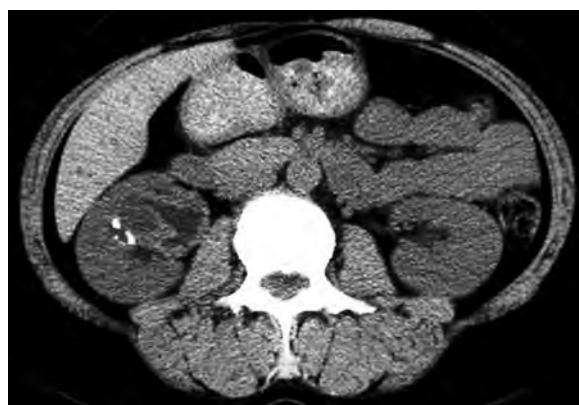
(Hinyokika Kiyo 60 : 555-559, 2014)

Key words : Inflammatory pseudotumor, Renal pelvic tumor

緒 言 症 例

炎症性偽腫瘍は筋繊維芽細胞や繊維芽細胞の特徴を示す紡錘形細胞の増殖と、炎症細胞の浸潤が著明な病変であり、肺を中心に全身で発生する¹⁾。今回、CTで嚢胞型腎癌の疑いで手術施行し、病理組織学的所見で炎症性偽腫瘍と診断された1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

患 者 : 45歳, 女性
主 訴 : 無症候性肉眼的血尿
家族歴 : 特記すべきことなし
併存症 : 高血圧, 高脂血症
既往歴 : 特記すべきことなし
現病歴 : 2010年4月, 無症候性肉眼的血尿を主訴に



a



b

Fig. 1. a : Abdominal CT showed a mass that consists of cystic and heterogeneous ingredients and that just out from the renal parenchyma into the renal pelvis. b : CT showed a mass that is stained slightly in all phases.

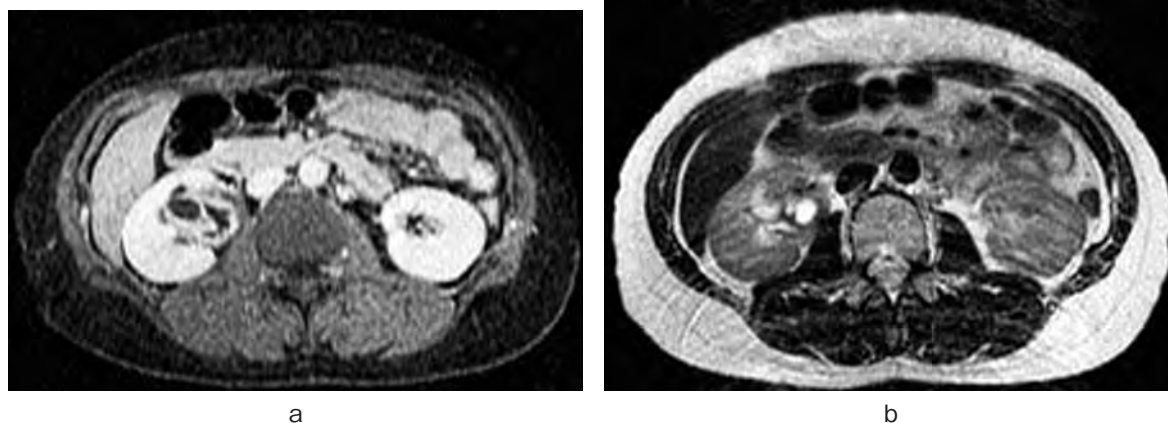


Fig. 2. a, b: MRI showed a mass hypointense on T1 weighted imaging and hyperintense on T2 weighted imaging.

当科紹介となった。

現 症：身長157.7 cm, 体重 64.4 kg, 身体所見に特記すべき異常を認めず。

受診時検査所見：

尿 検 査：糖 (-), 蛋白 (-), 潜血 (+), RBC 15~25/hpf, WBC 1~5/hpf

血液検査：RBC $402 \times 10^4/\text{mm}^3$, WBC $5,500/\text{mm}^3$, Hb 13.1 g/dl, Plt $29.0 \times 10^4/\text{mm}^3$, CRP 0.02 mg/dl, BUN 11.3 mg/dl, Cr 0.55 mg/dl, Na 138 mEq/l, K 4.1 mEq/l, Ca 9.2 mg/dl, AST 20 U/l, ALT 14 U/l.

尿細胞診：Class II

尿培養：Staphylococcus epidermidis $< \times 10^2$ CFU/ml

膀胱鏡：膀胱内に明らかな腫瘍や、尿管口より血尿の流出は認めず。

画像検査：初診時に施行した KUB では異常を認めず。単純 CT で腎実質から腎門部に突出するように、嚢胞成分を伴う内部不均一な腫瘍を認めた (Fig. 1a)。また、腎盂内に結石を疑う石灰化も多数認めた。1週間後に施行した造影 CT では、境界明瞭で内部に嚢胞成分を伴い、全相で淡く濃染する最大径 47 mm 大の腫瘍を認めた (Fig. 1b)。画像上、他部位の腫瘍や、リンパ節腫脹は認めなかった。また、尿管膀胱移行部に尿管結石を認めた。造影 CT 後の DIP では結石が原因と思われる右水腎症を認めた。単純 CT 時に腎盂内に認めた腎結石の1つが下降したものと考えられた。MRI では内部に T1 low, T2 high の多数の嚢胞形成を伴う、腎実質よりも淡く造影される腫瘍を認めた (Fig. 2a, b)。逆行性腎盂造影では腎盂内に陰影欠損は認めず、上腎杯の鈍化を認めた (Fig. 3)。腎盂尿細胞診は atypical cell を認め、class III であった。

以上の検査結果より、嚢胞型腎癌 cT1bN0M0 を強く疑ったが、尿細胞診の結果より腎盂癌の可能性もあり、患者に説明の上、腎尿管全摘術の方針となった。

術中所見：2010年5月、後腹膜鏡下右腎尿管全摘術を施行した。術中、腎門部に腫瘍を認めた。手術時間



Fig. 3. RP showed dullness of superior calyx of kidney.

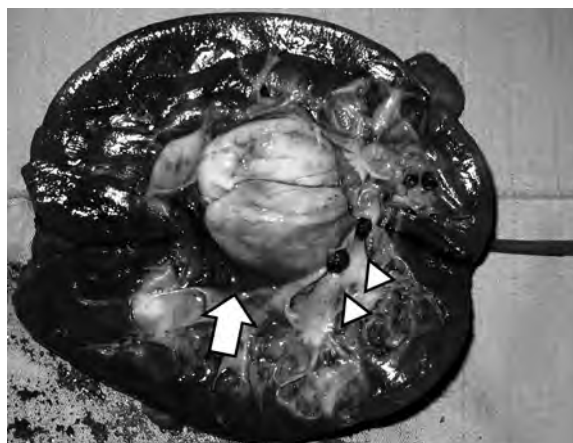


Fig. 4. The tumor consisted of thick dissepiment. Macroscopically the border between the tumor and the renal parenchyma was clear (arrow). Many stones were found in the renal pelvis (arrow heads).

は6時間32分, 出血量は150 mlであった。腫瘍は淡黄色, 太い隔壁から構成されており, 腫瘍と腎実質の境界は明瞭であった (Fig. 4)。また, 腎盂内に結石を認めた。

病理組織: HE 染色では, 嚢胞の表面は尿路上皮で覆われ, 内腔に突出する腫瘍は著明な炎症細胞浸潤と紡錘形細胞の増生を認めたが, 核の異型性は認めず, 悪性所見は認めなかった (Fig. 5a, b)。顕微鏡的にも

腎実質と腫瘍は離れており, 腫瘍を覆うように尿路上皮が存在し (Fig. 5c), 腫瘍は腎盂より発生していると考えられた。特殊免疫染色では α SMA に濃染し, vimentin, anaplastic lymphoma kinase (ALK, Fig. 5d) は陰性であった。以上の結果から腎盂に発生した炎症性偽腫瘍と診断した。

術後経過: 術後3年8カ月経過し, 再発, 転移は認めず経過している。

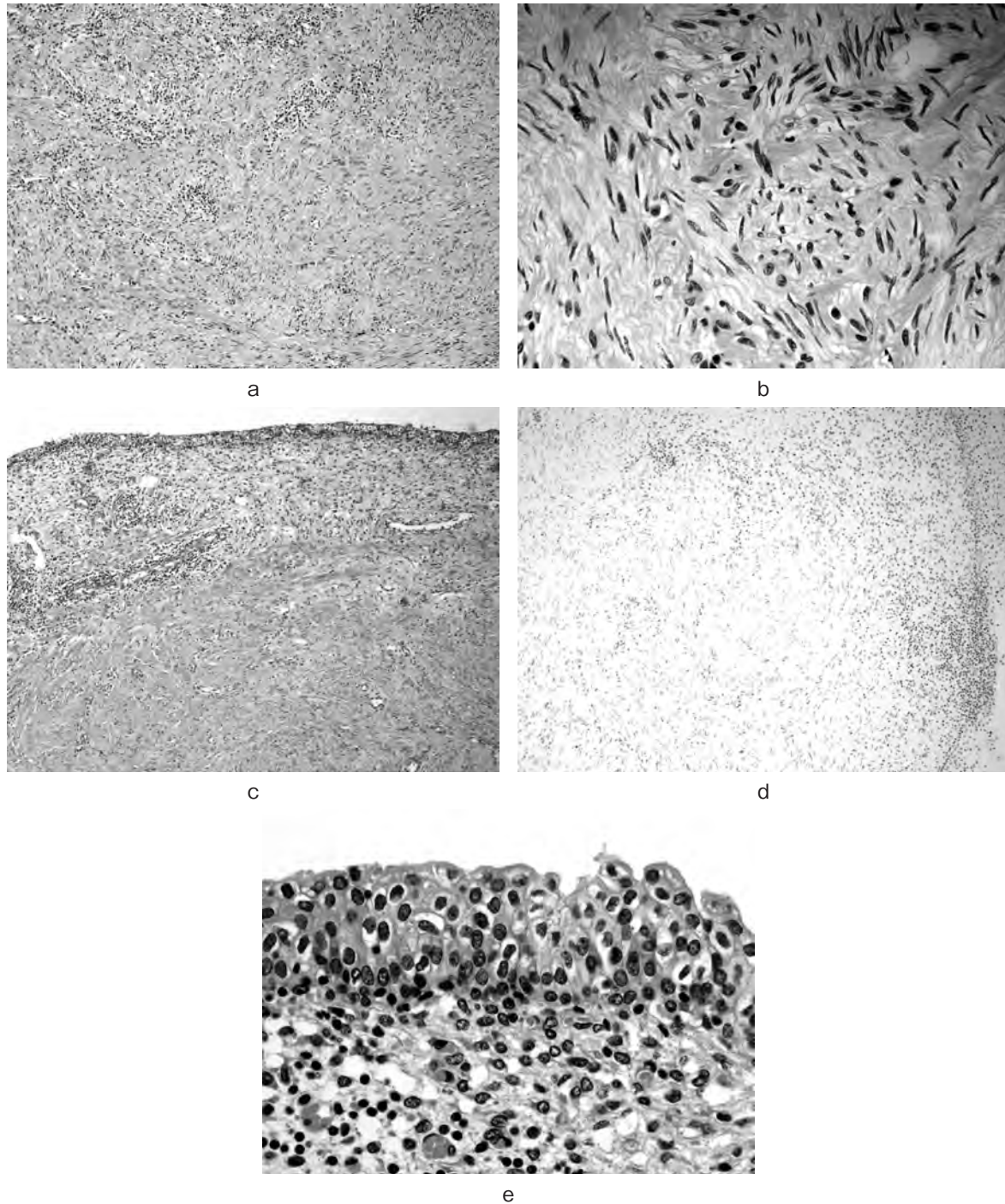


Fig. 5. a, b: Invasion of inflammatory cells and hyperplasia of spindle cells can be seen. There was no malignant sign. c: Urothelial cells can be seen covering the tumor. d: Immunohistochemical studies showed negative staining for ALK. e: Invasion of inflammatory cells can be seen in urothelial cells which was not a tumor lesion.

考 察

炎症性偽腫瘍は筋繊維芽細胞や繊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浸潤の著明な病変¹⁾であり、様々な疾患が含まれる。炎症性偽腫瘍に含まれる病変としては、1) 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瘍形成、3) 活動性感染による炎症性腫瘍、4) 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炎症性偽腫瘍がある¹⁾。本症例は腎結石、尿管結石を伴っており、腫瘍ではない部分の尿路上皮にも炎症所見を認め (Fig. 5e)、尿管結石による、感染ないし炎症の修復機転によるものと考えられる。

炎症性偽腫瘍のサブグループの中で、IMT は2004年の WHO 分類から良悪性中間的腫瘍に分類され、転移、再発例も報告されており²⁾、その腫瘍的性格が指摘されている³⁾ため、他の炎症性偽腫瘍と鑑別を要する。いずれも筋線維芽細胞および繊維芽細胞の過剰な増殖を認めるが、その増殖が腫瘍性か、炎症による反応性かの違いがある¹⁾。しかし、この違いは形態だけで判断するのは困難である。そこで近年注目されているのが ALK である。ALK は未分化大細胞リンパ腫において初めて見出された受容体型チロシンキナー

ゼであり、未分化大細胞リンパ腫や IMT で特異的に発現するといわれる⁴⁾。しかし、尿路系での ALK の発現は、膀胱を含む下部尿路では89~46% (中央値62%) であるが、上部尿路においては、ほとんど陽性例はないといわれており^{5,6)}、本症例でも陰性であった。その理由として、上部尿路から発生する炎症性偽腫瘍は大半が本症例と同様、感染・炎症の修復機転に発生する腫瘍であり、IMT によるものが下部尿路に比べてきわめて稀である可能性が考えられる。

炎症性偽腫瘍は、肺を中心に全身で発生する¹⁾が、尿路系の発生は比較的稀である。その中では膀胱発生が最多であるが、肺外発生は8.3%を占めるに過ぎない⁴⁾。腎盂発生はさらに稀で、本邦においてわれわれが調べた限りでは、自験例を含めて17例の報告例があった (Table 1)。平均年齢は、これまでの肺や消化管を中心とした炎症性偽腫瘍の報告¹⁾と同様に53.7歳と若く、主訴は17例中7例で肉眼的血尿、5例で側腹部および背部痛を認めた。炎症の誘因は不明な症例が多く、本症例と同様に尿管結石を認めたのは17例中2例のみであった。画像所見は様々であり、典型的な所見はない⁷⁾が、本症例のような、内部に嚢胞成分を伴う症例の報告は認めなかった。経過や治療法も様々で、腎盂内に腫瘍を認めるも、腎盂腎炎の治療が先行して行われ、1カ月後の CT で腫瘍の消失を認めた例⁸⁾や、尿管全摘術予定であったが、術中迅速で炎

Table 1. The case of inflammatory pseudotumors in renal pelvis (17 cases reported in Japan, including our case)

症例	報告	年齢 (歳)	性別	主訴	画像所見 (CT)	尿細胞診	生検	術前診断	治療
1	1982	12	M	肉眼的血尿	不明	不明	なし	腎癌	右腎部分切除
2	1992	69	M	肉眼的血尿	不明	不明	なし	腎盂癌	右腎尿管全摘
3	1997	54	M	左背部痛	造影される毛羽立った腫瘍	不明	なし	腎盂癌	左腎尿管全摘
4	1998	63	M	左水腎症	充実性	Class III	なし	腎盂癌	左腎尿管全摘後ステロイド
5	1999	74	M	肉眼的血尿	境界明瞭	Class II	なし	腎盂癌	左腎摘
6	1999	73	M	肉眼的血尿	不明	不明	なし	腎盂癌	左腎尿管全摘
7	2001	47	M	左側腹部痛発熱	ほとんど造影されない辺縁不明瞭な腫瘍	Negative	なし	腎盂癌	左腎尿管全摘
8	2001	25	F	肉眼的血尿	造影される不整形の腫瘍	Class II	尿管鏡挿入困難	腎盂癌	右腎摘
9	2001	64	M	腎結石 follow 中	辺縁明瞭、充実性腫瘍	Negative	なし	腎盂癌	右腎尿管全摘
10	2002	66	M	左水腎症精査	不明	不明	なし	腎盂癌	左腎摘
11	2004	20	F	発熱、腰痛	腎実質と等吸収の腫瘍	Class II	なし	腎盂腎炎	保存的加療
12	2006	58	F	CT で腫瘍指摘	Hypovascular	Negative	なし	腎盂癌	左腎摘
13	2008	60	F	左腰背部痛	腎盂壁が不均一に造影	Class III	なし	腎盂癌	左腎尿管全摘
14	2008	70	M	左腰背部痛	不明	不明	なし	腎盂癌	左腎尿管全摘
15	2008	63	M	CT で腫瘍指摘	不明	Class III	開放	炎症性偽腫瘍	ステロイド後左腎尿管全摘
16	2009	50	F	肉眼的血尿	不明	Class II	CT ガイド下	炎症性偽腫瘍	保存的加療
17	自験例	45	F	肉眼的血尿	内部不均一嚢胞成分を伴う	Class III	なし	嚢胞型腎癌	右腎尿管全摘

症性偽腫瘍と診断し、腎摘除術に術式変更された報告⁹⁾もある。また近年では、開放生検¹⁰⁾やCTガイド下生検¹¹⁾で炎症性偽腫瘍と診断され、保存的加療を施行された報告もある。また、最近、概念が普及してきたIgG4関連疾患の中に腎盂腫瘍との鑑別が困難であった症例も報告されている。Yoshinoら¹²⁾は腎盂癌を疑ったものの腎盂尿細胞診がnegative、生検を勧めたが拒否された症例で、IgG4が高値であったため臨床的にIgG4関連後腹膜線維症と診断し、ステロイド治療を行い、14カ月で腫瘍が消失した症例を報告している。治療にステロイドを用いることから、Table 1の症例の中にも、この疾患が含まれていた可能性がある。本症例では術前より嚢胞型腎癌を強く疑ったため、生検やIgG4の測定は施行しなかったが、画像診断が典型的でない腫瘍には、今後、CTガイド下、開腹あるいは、腹腔鏡下での生検を考慮する必要がある。

炎症性偽腫瘍は基本的には良性疾患であり、診断ができれば経過観察も選択肢の1つとなる。しかし、上部尿路に関しては生検で炎症性偽腫瘍と診断できても、ALKが発現した報告がなく、IMTとの鑑別は困難であることから、悪性の可能性は完全には否定できない。そのため、現時点では患者と相談の上、手術加療や、保存的加療でも慎重な経過観察が必要であると思われる。

結 語

腎盂に発生した炎症性偽腫瘍の1例を経験した。画像所見、尿細胞診のみでは診断は困難であり、画像所見が非典型的であれば生検を考慮すべきである。

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) Iczkowski KA, Shanks JH, Gadaleanu V, et al.: Inflammatory pseudotumor and sarcoma of urinary bladder: differential diagnosis and outcome in thirty-eight spindle cell neoplasms. *Mod Pathol* **14**: 1043-1051, 2001
- 3) Cheryl MC, Jan WB, John RP, et al.: Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). *Am J Surg Pathol* **19**: 859-872, 1995
- 4) 都築豊徳, 前田永子: 下部尿路系の炎症性偽腫瘍。病理と臨 **25**: 433-438, 2007
- 5) Tsuzuki T, Magi-Galluzzi C and Epstein JI: ALK-1 expression in inflammatory myofibroblastic tumor of the urinary bladder. *Am J Surg Pathol* **28**: 1609-1614, 2004
- 6) Chan JK, Cheuk W and Shimizu M: Anaplastic lymphoma kinase expression in inflammatory pseudotumors. *Am J Surg Pathol* **25**: 761-768, 2001
- 7) Sedlic T, Scali EP, Lee WK, et al.: Inflammatory pseudotumors in the abdomen and pelvis: a pictorial essay. *Can Assoc Radiol J* **65**: 52-59, 2013
- 8) 杉本公一, 林 泰司, 今西正昭, ほか: 保存的治療が可能であった腎盂炎症性偽腫瘍の1例。泌尿紀要 **50**: 629-631, 2004
- 9) 本田正史, 山本泰久, 齊藤源顕, ほか: 腎盂に発生した炎症性偽腫瘍。臨泌 **53**: 338-341, 1999
- 10) 高木公暁, 服部慎一, 山田佳輝, ほか: 悪性腫瘍との鑑別が困難であった傍腎盂炎症性偽腫瘍の2症例。西日泌尿 **70**: 178, 2008
- 11) 押野見和彦, 麻生太行, 佐々木春明, ほか: 診断に苦慮した腎盂腫瘍の1例。神奈川医会誌 **36**: 196, 2009
- 12) Yoshino T, Moriyama H, Fukushima M, et al.: A case of IgG4-related retroperitoneal fibrosis mimicking renal pelvic cancer. *Urol Int* **90**: 365-368, 2013

(Received on April 30, 2014)
(Accepted on July 1, 2014)