症例報告 V

腸重積で発症した盲腸炎症性偽腫瘍の1例

渡辺 卓央¹⁾ 成井 一隆¹⁾ 川邊 泰一¹⁾ 窪田 徹¹⁾
池 秀之¹⁾ 利野 靖²⁾ 益田 宗孝²⁾

済生会横浜市南部病院外科¹⁾, 横浜市立大学医学部附属病院外科治療学教室²⁾

症例は72歳の男性で、2009年6月、突然右下腹部痛が出現し、近医を受診した。右下腹部に腫瘤を触知し、腹部超音波検査で target sign を認め、腸重積の診断で緊急入院となった。腸重積は自然に解除されたが、大腸内視鏡検査で盲腸に4cm大の腫瘤を認めた。粘膜下腫瘍が疑われたが、悪性を否定できず、手術を施行した。盲腸に4cm大の弾性硬の壁外性腫瘤を認め、回盲部切除術を施行した。病理組織検査で紡錘形細胞の増生と炎症細胞の浸潤が見られ、炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor ; 以下、IPT) と診断した。大腸原発 IPT は稀であり、今回われわれは腸重積を契機に発見された盲腸 IPT の1例を経験したので報告する。

索引用語：炎症性偽腫瘍，回盲部，腸閉塞

はじめに

炎症性偽腫瘍 (Inflammatory pseudotumor ; 以下 IPT) は、炎症細胞浸潤をともなった限局性肉芽腫性病変で、肝、肺などで発生することが多く、悪性腫瘍との鑑別を要す¹⁾。消化管では胃や回腸に多く、大腸にはまれである。われわれは腸重積で発症した回盲部 IPT の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：72歳，男性。

主訴：右下腹部痛。

既往歴：60歳から高血圧で内服加療中。

現病歴：2009年6月、突然右下腹部痛が出現し、近医を受診した。右下腹部に腫瘤を触知し、腹部超

図1 腹部超音波検査

右下腹部に target sign (矢印) を認め、重積した腸管と思われた。

図2 下部消化管内視鏡検査

Bauhin 弁近傍に、表面に発赤と浮腫をともなう隆起性病変を認めた。

図 3 下部消化管造影検査
回盲部に境界明瞭な陰影欠損を認めた。

図 4 腹部造影 CT
盲腸に腫瘤影を認め、周囲にも広範に脂肪組織濃度の上昇が見られた。

音波検査で target sign を認め、腸重積の診断で当院に紹介され受診し、盲腸腫瘍による腸重積の診断で緊急入院した。

入院時現症：身長 167cm, 体重 71kg, 血圧 119/62 mmHg, 脈拍 61 回/分, 整, 体温 35.5℃ 腹部は平坦・軟で、右下腹部に圧痛をともなう 4cm 大で可動性良好の腫瘤を触知した。反跳痛や筋性防御は認めなかった。

入院時血液検査：WBC 7,800/mm³, CRP 6.08mg/

図 5 摘出標本
盲腸壁外に 4×3cm の灰白色で弾性硬の腫瘤を認めた。周囲との境界はやや不明瞭であった。

図 6 病理組織学的検査
a) 紡錘形細胞の増生とリンパ球・形質細胞・好酸球などの炎症細胞の浸潤が見られた。
b) 紡錘形細胞は SMA 陽性で筋線維芽細胞であった。

dl であった。腫瘍マーカーは CEA は 4.0ng/ml で正常範囲であったが、CA19-9 は 47U/ml と軽度上昇していた。また、可溶性 IL-2 レセプターが 1,356U/ml と上昇していた。

腹部超音波検査（図 1）：右下腹部に target sign を認め、重積した腸管と思われた。

下部消化管内視鏡検査（図 2）：Bauhin 弁近傍に、表面に発赤と浮腫をともなう隆起性病変を認めた。

表 1 大腸および直腸 IPT の本邦報告例（会議録を含む）

	Author	Year	Age/Sex	Location	Size (cm)	Treatment
1	Nishihara ⁸⁾	1978	41/F	Ce	6.0×3.5×3.5	Ileo-cecal resection
2	Matsuzaki ⁹⁾	1979	69/F	T	5.0×2.5	Colectomy
3	Takemori ¹⁰⁾	1980	52/F	T	2.4×1.6×1.5	Colectomy
4	Sugimura ¹¹⁾	1981	1/F	D	3.5×2.7×1.2	Colectomy
5	Suzuki ¹²⁾	1983	20/M	T	4.5×3.5×2.5	ND
6	Hashimoto ¹³⁾	1983	46/F	Ce	8	Ileo-cecal resection
7	Shimizu ¹⁴⁾	1984	32/M	Ce	3.5×2.5×2.5	Right hemicolectomy
8	Fukuda ¹⁵⁾	1985	48/M	Ce	3	ND
9	Sasaki ¹⁶⁾	1989	65/M	Ap	3.0×2.5	Right hemicolectomy
10	Miyagawa ¹⁷⁾	1990	7/F	Ce	5.2×4.7×3.4	Colectomy
11	Yamagiwa ¹⁸⁾	1990	41/F	Ap	3.0×3.0	Appendectomy
12	Imatsu ¹⁹⁾	1993	43/M	S	3.0×2.0	Sigmoidectomy
13	Taguchi ²⁰⁾	1993	32/F	S	4.0×3.6×3.4	Sigmoidectomy
14	Yamamoto ²¹⁾	1993	28/M	R	1.5	Polypectomy
15	Iwasaki ²²⁾	1994	66/F	R	5.0×2.0×2.0	Right hemicolectomy
16	Yoshikawa ²³⁾	1994	81/F	Ce	0.8×0.4×0.4	Polypectomy
17	Horie ²⁴⁾	1995	51/M	Ap	5.0×2.0	Sigmoidectomy
18	Ozeki ²⁵⁾	1996	43/M	Ap	7.0×6.0×6.0	Ileo-cecal resection
19	Ohno ²⁶⁾	1998	71/F	T	7.2×5.4×5.4	Colectomy
20	Nakase ²⁷⁾	2000	45/F	Ce	0.5×0.4×0.5	Polypectomy
21	Nagata ²⁸⁾	2001	77/F	Ap	2.5×2.5	Ileo-cecal resection
22	Kawashima ²⁹⁾	2001	79/M	Ce	5.0×3.0×3.0	Ileo-cecal resection
23	Akagi ³⁰⁾	2006	76/M	Ap	2.0×2.0	Ileo-cecal resection
24	Taura ³¹⁾	2006	41/F	A	2	Ileo-cecal resection
25	Taura	2006	45/F	A	2	Colectomy
26	Hasegawa ³²⁾	2007	32/M	S	1.5	Sigmoidectomy
27	Mado ³³⁾	2009	71/M	SS	1.5	enucleation of tumor
28	Teraishi ³⁴⁾	2009	58/M	Ce	ND	Ileo-cecal resection
29	Our case	2009	72/M	Ce	4.0×3.0	Ileo-cecal resection

Ce : Cecum, T : Transverse colon, D : Descending colon, Ap : Appendix,

S : Sigmoid colon, R : Rectum, SS : Sigmoid colon stoma, ND : not described

生検の結果は、Group I で、腺上皮に異型はなく腫瘍性増殖像も認められなかった。

下部消化管造影検査（図 3）：回盲部に境界明瞭な陰影欠損を認めた。

腹部造影 CT（図 4）：盲腸に腫瘤影と周囲の広範な脂肪組織濃度の上昇を認めた。

入院後経過：入院直後に腹痛は消失し、腸重積は自然整復したと判断した。悪性の可能性も考慮し、入院後 8 日目に開腹術を施行した。

手術所見：盲腸壁外に 4cm 大の硬い腫瘤を認めた。周囲のリンパ節は腫大し、腫瘤は右精巣動静脈と S 状結腸間膜を巻き込んでいた。右精巣動静脈および S 状結腸間膜の一部を合併切除し、回盲部切除（D2 郭清）を施行した。

摘出標本（図 5）：盲腸壁外に 4×3cm の灰白色で弾性硬の腫瘤を認めた。周囲との境界はやや不明瞭であった。

病理組織学的検査（図 6）：紡錘形細胞の増生とリンパ球・形質細胞・好酸球などの炎症細胞の浸潤を認めた。免疫染色では紡錘形細胞は smooth muscle actin（SMA）陽性で筋線維芽細胞であったが、anaplastic lymphoma kinase（ALK）は陰性であった。特異的な炎症像や腫瘍性増殖は認めず、盲腸炎症性偽腫瘍と診断した。

術後経過：術後経過は良好で、第 17 病日に退院した。術後 11 カ月経過し、外来経過観察中で再発を認めない。

考 察

炎症性偽腫瘍（IPT）は、消化管などに見られる炎症性肉芽腫性病変で、線維芽細胞増生、粗な線維組織増生、好酸球、リンパ球浸潤などをともなう炎症性の幼若な肉芽腫の形成を特徴とする。1920 年、Konjetzny ら²⁾ が胃の好酸球浸潤をともなう粘膜下

腫瘍を polypoid fibroma として報告して以来, さまざまな名称が報告された. 1953 年 Helwig ら³⁾は, inflammatory fibroid polyp (IFP) として報告し, Umiker ら¹⁾はこれらがあたかも悪性腫瘍の様相を呈することより IPT と総称し, 以後主としてこの名称が用いられるようになった.

成因はいまだ不明であり, 感染, 外傷, 副腎皮質ホルモン使用, 手術, 放射線照射の関与が報告されている^{4,5)}.

発生部位は肺が最も多く, 心臓, 消化管, 肝, 脾, 眼窩, 甲状腺, 中枢神経系, リンパ節, 胸腺, 泌尿生殖器と多岐にわたる⁵⁻⁷⁾. 消化管では胃・回腸に多く, 大腸は比較的まれである. 大腸 IPT の報告は, 1953~2010 年 3 月までに「炎症性偽腫瘍」をキーワードとして医学中央雑誌で検索したところ, 自験例を含めて 29 例⁸⁻³⁴⁾であった (表 1).

IPT は消化管内腔にポリープ状に突出した腫瘍を形成することが多く, 症状は腹痛, 発熱, 腹部腫瘍触知, 貧血などがある. また, 腫瘍径の増大により腸重積や出血を併発し, 諸家の集計では小腸 IPT の 70~80% に腸重積を認めるとされる¹⁹⁾.

実質臓器と異なり画像診断上特異的な所見に乏しく, 粘膜下腫瘍であるため組織生検による診断が困難で, 本症例のように悪性を考慮し手術となることが多い. 浦岡らによると, 腫瘍の増大によって表面に潰瘍をとめない隆起の頂部に深い陥凹を示す型の他に, 隆起上部の粘膜が広く欠損して陰茎龟头様外観を示すとされる³⁵⁾. 陰茎龟头様外観は IPT の特徴とされ, 術前診断に有用であったとする報告もある³⁶⁾.

竹内らは, 脾原発 IPT 7 例を検討し, 7 例中 5 例に可溶性 IL-2 レセプター (sIL-2R) の上昇を認めたと報告した³⁷⁾. sIL-2R の上昇は, 炎症細胞の集簇である IPT 中の活性化されたリンパ球から sIL-2R が遊離したためとされる. 一方, 大腸 IPT の sIL-2R は, 本例 1,356U/ml と, 寺石ら³⁴⁾747U/ml の 2 例で行われているのみであった. いずれも上昇しており, sIL-2R の上昇は本疾患の診断に有用な可能性があると思われた.

治療は, 本邦報告例では, 1.5cm までの小さなものはポリペクトミーが行われているが, それ以上のものは虫垂切除や結腸部分切除などの幅広い術式が選択されている. IPT の悪性化の報告はないが, 悪性

腫瘍や他の粘膜下腫瘍との鑑別が困難で, 増大すると, 重積や出血など合併症を併発するため, 発見したら放置せずに適切な切除術を施行することが望ましいと考える.

謝辞

稿を終えるにあたり, 本症例に病理組織学のご指導を賜りました当院病理検査科 中村宣子先生に深謝致します.

文 献

- 1) Umiker WO: Postinflammatory tumors of the lung: report of four cases simulating xanthoma, fibroma or plasma cell tumor. J Thorac Surg 28: 55-63, 1954
- 2) Konjetzny GE: Uber magenfibrome. Klin Chir 119: 53-61, 1920
- 3) Helwig EB, Rander A: Inflammatory fibroid polyp of the stomach. Surg Gynecol Obstet 96: 355-367, 1953
- 4) Arber DA, Kamel OW, van de Rijn M, et al: Frequent presence of the Epstein-Barr Virus in inflammatory pseudotumor. Hum Pathol 26: 1093-1098, 1995
- 5) 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
- 6) Rubin BP: Recent progress in the classification of soft tissue tumors: role of genetics and clinical implications. Curr Opin Oncol 13: 256-260, 2001
- 7) Narla LD, Newman B, Spottswood SS, et al: Inflammatory pseudotumor. Radiographics 23: 719-729, 2003
- 8) 西原幸一, 水島陸枝, 伊藤慈秀ほか: 盲腸の Inflammatory fibroid polyp [Helwig] の 1 例. 癌の臨 24: 1311-1316, 1978
- 9) 松崎松平, 菊池一博, 岩村健一郎ほか: 大腸に発生した Eosinophilic Granuloma (Inflammatory Fibroid Polyp) の一例. 日消誌 76: 126-132, 1979
- 10) 竹森弘光, 相沢 中, 菅原 耕ほか: Recklinghausen 病に併発した大腸好酸球性肉芽腫 (Inflammatory Fibroid Polyp) の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 33: 217-221, 1980
- 11) 杉村公平, 橋本 俊, 加藤文彦ほか: 大腸の Inflammatory fibroid polyp の一例. 日本大腸肛門病会誌 34: 26-30, 1981
- 12) 鈴木秀和, 柳谷重利, 福士勝久ほか: 横行結腸に発生した Inflammatory fibroid polyp の 1 例. Gastroenterol Endosc 25: 1111, 1983
- 13) 橋本大定, 佐藤健吾, 宇野武治ほか: 盲腸に発生した Inflammatory fibroid polyp の 1 例. 日消誌 80: 2316-2317, 1983
- 14) 清水誠治, 多田正大, 山本 実ほか: 盲腸の Inflammatory Fibroid Polyp の 1 例. Gastroenterol Endosc 6: 900-904, 1984
- 15) 福田康二, 南八多美, 生田篤也ほか: 大量出血を示した大腸 Inflammatory fibroid polyp の 1 例. Gastroenterol Endosc 27: 588-589, 1985

- 16) 佐々木正寿, 花立史香, 山村浩然ほか: 虫垂原発の inflammatory pseudotumor の 1 例. 消 外 12: 519-522, 1989
- 17) 宮川智幸, 西村 洋, 小泉 勉ほか: 大腸 Inflammatory Fibroid Polyp の免疫組織化学的および電顕的検討. 埼玉小児医療センター医誌 6: 132-135, 1990
- 18) 山際裕史, 寺田紀彦, 橋本 修ほか: 虫垂の inflammatory pseudotumor の 1 例. 癌の臨 36: 1059-1062, 1990
- 19) 今津浩喜, 笠原正男, 黒田 誠ほか: inflammatory fibroid polyp (IFP) の 2 例. 日臨外医会誌 54: 455-460, 1993
- 20) 田口久雄, 高原 聡, 楠本征夫ほか: S 状結腸 Inflammatory Fibroid Polyp の 1 例. Gastroenterol Endosc 36: 335-341, 1993
- 21) 山本雅由, 杉田 昭, 石原伸一ほか: 直腸の炎症性線維性ポリープ Inflammatory Fibroid Polyp の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 46: 778-782, 1983
- 22) 岩崎 茂, 水口滋之, 大和田進ほか: 盲腸の inflammatory fibroid polyp による成人腸重積症の 1 例. 日臨外医会誌 55: 2616-2620, 1994
- 23) Yoshikawa I, Murata I, Abe S, et al: Plasma cell granuloma of the colon: a report of a case removed by endoscopic polypectomy. Am J Gastroenterol 89: 1249-1252, 1994
- 24) 堀江良彰, 金丸 洋, 多田真和ほか: 虫垂黄色肉芽腫の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 48: 509-514, 1995
- 25) 小関啓太, 八重樫寛治, 大野 玲ほか: 虫垂の炎症性偽腫瘍の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 51: 30-34, 1998
- 26) Ohno M, Nakamura T, Ohbayashi C, et al: Colonic obstruction induced by plasma cell granuloma of the transverse colon: report of a case. Surg Today 28: 416-419, 1998
- 27) Nakase H, Miura J, Kawasaki T, et al: Endoscopic resection of small inflammatory fibroid polyp of the colon. Intern Med 39: 25-27, 2000
- 28) 長田拓哉, 山岸文範, 渡辺智子ほか: 虫垂炎を原因として発生した炎症性偽腫瘍の 1 例. 北陸外科会誌 20: 51-54, 2001
- 29) 河島秀昭, 樫山基矢: 回盲部に発生した炎症性偽腫瘍の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 54: 137-140, 2001
- 30) 赤木純児, 高橋教朗, 岡崎伸治ほか: 虫垂に発生した炎症性偽腫瘍の 1 例. 日消外会誌 39: 1718-1724, 2006
- 31) 田浦尚宏, 山本明彦, 福田 誠ほか: 大腸炎症性腫瘍の 2 例. 天草医学会雑誌 20: 21-24, 2006
- 32) 長谷川潤: 術前 GIST が疑われた S 状結腸 inflammatory pseudotumor の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 60: 858, 2007
- 33) 間遠一成, 増田英樹, 間崎武郎ほか: 人工肛門部に発生した炎症性偽腫瘍の 1 例. 日臨外会誌 70: 798-801, 2009
- 34) 寺石文則, 鈴木健夫, 仲本雅子ほか: 直腸と瘻孔を形成した回盲部 inflammatory pseudotumor の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 62: 257-261, 2009
- 35) 浦岡正義, 淵上忠彦, 岩下明德ほか: 巨大な胃の inflammatory fibroid polyp の 1 例. 胃と腸 23: 95-101, 1988
- 36) 成宮徳親: 大量の下血をきたした胃好酸球性肉芽腫の 1 例. ProgDigEndosc 16: 194-197, 1980
- 37) 竹内 聖, 柏木裕貴, 藤田博崇ほか: FDG-PET で陽性所見を呈した脾原発炎症性偽腫瘍の 1 例. 日消外会誌 41: 218-223, 2008

A Case of an Inflammatory Pseudotumor Arising from the Ileocecal Portion of the Colon

Takuo Watanabe¹⁾, Kazutaka Narui¹⁾, Taichi Kawabe¹⁾, Toru Kubota¹⁾, Hideyuki Ike¹⁾,
Yasushi Rino²⁾ and Munetaka Masuda²⁾

¹⁾Department of Surgery, Saisei-kai Yokohama-shi Nanbu Hospital, ²⁾Department of General Surgery, Yokohama City University

A 72-year-old man complained of a palpable mass on the right lower abdomen and abdominal pain beginning in June 2009. Ultrasonography and CT scan revealed a tumor of a lamellar structure. Intussusception was diagnosed, however, it spontaneously reduced just after admission. A colonoscopy showed an elevated lesion in the cecum. Although the pathological findings for a biopsy of the elevated lesion suggested a Group I lesion, the possibility of malignancy could not be ruled out and so an ileocecal resection was performed. Histologically, the tumor consisted of marked infiltration of the fibroblasts and inflammatory cells. There were no neoplastic changes and thus inflammatory pseudotumor was diagnosed.

IPT of the colon is rare. The pathogenesis of IPT is unknown and it is hard to make a definite diagnosis without tissue sampling. Surgical resection was reported to be frequently performed because of the potential for malignancy. A soluble IL-2 receptor could be helpful for making a diagnosis in cases suspected of this disease.

(2010 年 10 月 18 日受付)

(2011 年 1 月 5 日受理)