症 例

1年6カ月経過観察の後切除した脾炎症性偽腫瘍の1例

社会保険中京病院外科

大 城 泰 平 弥 政 晋 輔 京 兼 隆 典
東 島 由一郎 後 藤 秀 成 松 田 眞佐男

脾炎症性偽腫瘍の1例を報告する。症例は43歳、男性。検診エコーで脾に境界不明瞭な腫瘤を指摘された。1年6カ月の経過で腫瘤は20mmに増大し分葉状の変化を認めたため悪性リンパ腫の可能性も考慮し腹腔鏡下脾摘出術を施行した。断面は白色の線維性の腫瘤で炎症性偽腫瘍と診断した。脾炎症性偽腫瘍の自然経過を観察した症例は少ないが炎症性の腫瘤であるため予後は良好である。経過観察も可能と考えられる。

索引用語：炎症性偽腫瘍，脾臓，自然経過

緒 言

炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) は非特異的炎症および間葉系組織の修復像を主体とした良性疾患である。画像診断では悪性腫瘍との鑑別が困難なため、脾臓の炎症性偽腫瘍では脾臓摘出が診断、治療を兼ねた意義を有しており、切除後の予後も良好である。

今回、われわれは1年6カ月の経過観察の後、腹腔鏡下に脾の炎症性偽腫瘍を摘出した。自然経過を観察した症例は少なく、文献の考察を加えて報告する。

症 例

患者：43歳、男性。

主訴：自覚症状なし。

既往歴、家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成16年9月検診の腹部超音波検査で脾腫瘤を指摘された(図1)。腫瘤は12mm大で身体所見に異常なく、消化管精査を含む各種検査とも異常を認めず、3カ月おきに経過観察が行われた。平成18年3月腹部エコー検査で腫瘤が20mmに増大したため、精査を行った。

身体所見：身長167cm、体重65kg、眼瞼結膜に貧血なく、眼球結膜に黄疸を認めなかった。腹部は平坦で肝、脾を触知せず、表在リンパ節を触知しなかった。

採血検査：血算、生化学検査では異常値を認めず、

腫瘍マーカー CEA 0.7, CA19-9 4.9と正常範囲内であった。

腹部超音波検査：脾に境界不明瞭で内部不均一な高エコーの腫瘤を認めた。

腹部CT検査：単純CT検査では腫瘤を描出しなかった。dynamic scan (図2a)では腫瘤の被膜に造影効果を認めた。平衡相(図2b)では腫瘤内部の大部分は造影効果を認めず、一部が索状に造影された。リンパ節腫大なく、その他腫瘍性病変を認めなかった。

腹部MRI検査：T1強調像(図2c)では内部不均一で低信号、T2強調像(図2d)で不均一な低信号腫瘤を認めた。辺縁は分葉状で、索状影を伴っていた。

図1 腹部超音波検査：脾に境界不明瞭で内部不均一な12mmの高エコー腫瘤を認めた。

2008年2月18日受付 2008年7月14日採用

〈所属施設住所〉

〒457-8510 名古屋市南区三条1-1-10

図2 腹部CT検査(a, b)腹部MRI検査(c, d)：脾臓に境界明瞭で辺縁不整な腫瘤を認める。CT Dynamic scan (a)では被膜に造影効果を伴い、腫瘤内部はlow densityで索状の造影効果を認める。CT平衡相(b)腫瘤実質は造影を認めない。T1強調画像(c) T2強調画像(d)とも内部不均一で低信号の腫瘤である。T2では内部に索状影を認める。

a	b
c	d

図3 手術創：①12mm ポート カメラ用 ②③ ④操作用ポート。腹腔内で遊離した脾臓を③④ポート創を延長して摘出した(破線)。

消化管内視鏡検査：上部，下部とも異常を認めなかった。

以上の検査により，炎症性偽腫瘍，悪性リンパ腫，血管肉腫などを鑑別に挙げ，診断確定のため脾臓切除を行った。

手術操作：図3に示すように臍下部に12mm ポート①を挿入し腹腔鏡用とした。操作用ポートは左肋弓に沿って3カ所とした。脾下極の短胃動静脈数本を切離の後，エンドパス45mmを用いて脾門部の動静脈を切離した。脾臓摘出時にポート孔③④を延長し Endocatchを用いて脾を回収し破碎することなく摘出した。手術時間は2時間5分で出血は少量であった。

切除標本所見(図4 a)：摘出した脾臓は150gで割面に20mmの充実性した腫瘤を認めた。脾実質との境界は明瞭で全体としては白色調で繊維質な腫瘤であった。内部に赤色肉芽様の増生を認めた。

病理組織学的所見(図4 b)：腫瘍境界は明瞭で結節状に幼若～成熟線維細胞の集塊がみられ，血管増生，

図4 a 切除標本：左—新鮮標本，右—固定標本。脾上極に20mm 大の腫瘤を認める。脾実質との境界は明瞭で全体としては白色調で繊維質な腫瘤である。内部に赤色肉芽様の増生を認める。

b 組織学的所見：結節状に幼若～成熟線維細胞の集塊（矢印）がみられ，血管増生，リンパ球，hemosiderin 貪食細胞の浸潤がみられた。中心部から放射状に繊維組織の増生（矢頭）がみられる。

a
b

リンパ球，hemosiderin 貪食細胞の浸潤がみられた。中心部から放射状に繊維組織の増生があり，悪性所見は無かった。免疫組織化学的検査では Actin 陽性，Desmin 陰性，CD34陰性，ALK-1陰性で EBV 染色も陰性であった。以上により炎症性偽腫瘍と診断した。

術後経過：術後経過は良好で，術後7日目に退院した。

考 察

炎症性偽腫瘍は境界明瞭な腫瘍性病変で，組織学的には非特異的炎症および間葉系組織の修復像を主体とした良性疾患である。好発部位として肺，肝，心臓，眼窩，リンパ節，軟部組織が挙げられる。脾臓の炎症性偽腫瘍は1984年に Cotelingam¹⁾らにより初めて報

告され，本邦では現在までに60例余りが報告されている^{2)～9)17)}。成因として細菌感染，局所の虚血性変化¹⁾，出血，自己免疫反応¹⁰⁾EBV の関与¹¹⁾などが示唆されている。本症例では基礎疾患，外傷歴，手術歴なく原因は推測できなかった。

脾の炎症性偽腫瘍に関する最近の知見として，類縁疾患と考えられていた筋線維芽細胞由来の腫瘍性病変である IMT（炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 inflammatory myofibroblastic tumor）と濾胞樹状細胞由来の腫瘍である ITP-like FDC tumor（EBV 関連炎症性偽腫瘍様濾胞樹状細胞性腫瘍）が臨床病理学的特徴の違いから区別されるようになったことが挙げられる¹²⁾。

炎症性偽腫瘍は良性であるのに対し，IMT は遠隔転移をきたすことのある良悪性中間型の腫瘍として比較的最近位置づけられた稀な疾患である¹³⁾。今日でも炎症性偽腫瘍や形質細胞性肉芽腫などと同義語として扱っている文献も少なくないが，炎症性偽腫瘍は炎症性であり腫瘍である IMT と厳密には区別される。筋線維芽細胞の特徴を示す紡錘形の細胞の増殖から成り，最近では ALK（anaplastic lymphoma kinase）の発現が診断上の重要な所見とみなされている¹⁴⁾。ITP-like FDC tumor（EBV 関連炎症性偽腫瘍様濾胞樹状細胞性腫瘍）は2001年に Cheuk, Chan らによって11例の報告¹⁵⁾がなされ（脾原発3例）その疾患の独立性が確立された疾患である。腫瘍内での EBV 検出，濾胞樹状細胞 follicular dendritic cell（FDC）マーカーの発現により診断される。女性に優位に発生し体重減少，発熱などの全身症状を伴うことが報告されている¹⁵⁾。

本邦では脾 IMT は2例¹⁶⁾報告され ITP-like FDC tumor の報告はない。しかし，今までの脾脾炎症性偽腫瘍報告例の中に炎症性偽腫瘍，IMT，ITP-like FDC tumor の3疾患が混在していると推測される¹²⁾。本症例は IMT，ITP-like FDC tumor 鑑別のために ALK-1，EBV 染色を行い陰性であった。

本邦の報告例を元に脾の炎症性偽腫瘍は経過観察が可能かどうか検討を行った。本邦報告の65例^{2)～9)}は年齢が23歳から86歳で性差はなく，無症状で検診など偶然発見された症例が多い。腫瘍径は2cm から12cm で，破裂した症例は報告されていない。全て単発性腫瘍である。針生検を行った1例¹⁷⁾を除き，切除により診断と治療が行われてきた。切除後の予後は良好であった。

本症例では腫瘍径が12mm から20mm へ増大し分葉状の変化がみられ，悪性腫瘍が否定できないため切除

表 1 炎症性偽腫瘍 経過観察症例

報告者	報告年度	年齢	性別	既往歴	症状	経過観察期間	腫瘍径(初診時→切除時)	エコー	CT	MRI	angiography	画像診断上の変化	手術方法
1 藤田 ³⁾	1998	58	F	なし	左側腹部痛	2年7カ月*	90mm → 105mm	low echo with high echo spot	calcification (+) enhancement (-)	T1 iso: T2 low	hypovascular	腫瘍増大	開腹手術
2 Moriyama ⁴⁾	2000	45	M	なし	なし	1年3カ月	17mm → 29mm	low echo	enhancement (-)	T1 low: T2 low	hypovascular	腫瘍増大	開腹手術
3 園田 ⁵⁾	2000	42	F	なし	なし	1年	65mm → 80mm	low echo	enhancement (-)	T1 low: T2 low	hypovascular	腫瘍増大	開腹手術
4 平田 ⁶⁾	2001	67	F	なし	なし	3年	39mm → 57mm	low echo with high echo spot	enhancement (-)	T1 iso: T2 low	hypovascular	腫瘍増大	開腹手術
5 町田 ⁷⁾	2002	42	M	十二指腸潰瘍	なし	2年3カ月	12mm → 25mm	low echo	enhancement (-)	T1 iso: T2 low		腫瘍増大	腹腔鏡下脾摘出術
6 村上 ⁸⁾	2003	59	M	ITP ^{※2}	皮下出血	1.5カ月	60mm → 30mm	low echo with high echo spot	enhancement (-)	T1 low: T2 low	hypovascular	腫瘍増大	腹腔鏡下脾摘出術
7 村上 ⁹⁾	2004	68	F	乳癌	なし	1年	10mm → 25mm	low echo	enhancement (-)	T1 low: T2 low	hypovascular	腫瘍増大	腹腔鏡下脾摘出術
8 自験例	2008	43	M	なし	なし	1年6カ月	12mm → 20mm	high echo	enhancement (-)	T1 low: T2 low		分葉状変化	腹腔鏡下脾摘出術

*1 摘出7年前に脾腫瘍を指摘されているが詳細が明らかでないため経過観察期間を2年7カ月とした

*2 ITP 血小板減少性紫斑病

を行った。切除診断の前に1年以上の経過観察を行った症例を医学中央雑誌より検索した。症例は8例(表1)で、悪性リンパ腫等の悪性疾患の可能性が低いと判断されて経過観察が行われていた。観察期間中の臨床症状は腫瘍の大きい症例1で圧排のためと推測される腹痛を認めたが、他の症例は自覚症状や身体所見は伴わなかった。症例6では腫瘍内出血の吸収と推測される腫瘍の縮小を認めたがその他の7症例では1年あたり直径で5mmから15mmの増大が観察された(平均8.7mm)。腫瘍数の増加や転移は見られなかった。脾臓の腫瘍が発見された場合、鑑別診断として、悪性リンパ腫、転移性腫瘍、血管腫、肉芽腫(結核、真菌、サルコイドーシス)、過誤腫等が挙げられるが、炎症性偽腫瘍は単発の症例がほとんどで腫瘍内部の線維成分や間質組織が富むことを反映した所見が画像検査で観察される。造影CTで腫瘍内部に放射状の低濃度巣が存在することや、MRIT2強調像で低信号腫瘍とともに内部が索状に観察される²⁾ことなどが特徴として挙げられる。今回の症例ではエコー検査で高エコー像を示していたが、CT MRI検査で索状の内部構造を認めており、炎症性偽腫瘍が最も疑われる画像所見であった。他の経過観察7例はいずれの症例も悪性腫瘍を完全に否定することはできないが造影CT検査で造影効果を認めず、MRIでT1強調像で低から等信号T2強調像で低信号の腫瘍として描出され炎症性偽腫瘍の特徴を示していた。

炎症性偽腫瘍は真の腫瘍ではなく炎症性である。肝の炎症性偽腫瘍では縮小、消失した症例の報告があり¹⁸⁾、脾の炎症性偽腫瘍でも腫瘍が縮小し切除が不要となる可能性もある。経過観察症例8例中7例は増大傾向を示したが切除後の予後は良好なため経過観察を行うことは十分可能と考えられる。

一方でIMT、ITP-like FDC tumorは症例の報告は少ないものの遠隔転移や切除後の局所再発が報告されているため、経過観察の際は同疾患の存在について留意する必要がある。

結 語

脾に発生した炎症性偽腫瘍を1年6カ月の経過観察の後に切除した。報告例では増大傾向を示していたため切除が行われたが、良性疾患のため画像検査を参考に経過観察も可能と考えられる。

文 献

- 1) Cotelingam JD: Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Am J Surg Pathology* 8: 375—380, 1984
- 2) 吉岡 宏, 倉吉和夫, 河野菊宏他: MRI, T2強調像にて放射状低信号を呈した脾炎症性偽腫瘍の1例 本邦報告例の臨床的検討. *日消外会誌* 37: 187—192, 2004
- 3) 藤田佳史, 生駒久視, 中西正芳他: 脾の炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) の1例. *京府医大誌* 107: 703—707, 1998
- 4) Moriyama S, Inayoshi A, Kurano R: Inflammatory Pseudotumor of the spleen: report of a Case. *Surg Today* 30: 942—946, 2000
- 5) 園田幸生, 大塚隆生, 松永浩明他: 脾原発炎症性偽腫瘍の1例. *日臨外会誌* 61: 1572—1574, 2000
- 6) 平田稔彦, 山根隆明, 松金秀暢他: 脾炎症性偽腫瘍の2例. *日臨外会誌* 62: 3040—3044, 2001
- 7) 町田彰男, 村上雅彦, 牧田英俊他: 腹腔鏡下で切除した脾炎症性偽腫瘍の1例. *日臨外会誌* 63: 2537—2542, 2002
- 8) 村上千づ子, 岸 清志, 小村裕美他: 脾原発 inflammatory pseudotumor の1例. *鳥取医誌* 31: 12—17, 2003
- 9) 村上陽昭, 浦上 淳, 平林葉子: 腹腔鏡下脾臓摘出を行った inflammatory pseudotumor の1例. *川崎医会誌* 30: 195—201, 2004
- 10) Thomas RM, Jaffe ES, Zarete-Osorno A: Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Arch Pathol Lab Med* 117: 921—926, 1993
- 11) Arber DA, Kameln OW, Rijn M, et al: Frequent presence of the Epstein-Barr Virus in inflammatory pseudotumor. *Hum Pathol* 26: 1093—1098, 1995
- 12) 住熊 勉: 脾の炎症性偽腫瘍. *病理と臨* 25: 482—483, 2007
- 13) 久岡正典, 橋本 洋: 炎症性筋線維芽細胞性腫瘍における最近の知見. *病理と臨* 25: 421—426, 2007
- 14) Cook JR, Dehner LP, Collins MH: Anaplastic lymphoma kinase (ALK) expression in the inflammatory myofibroblastic tumor: a comparative immunohistochemical study. *Am J Surg Pathol* 25: 1364—1371, 2001
- 15) Cheuk W, Chan J: Inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell tumor: a distinctive low-grade malignant intraabdominal neoplasm with consistent Epstein-Barr virus association. *Am J Surg Pathol* 25: 721—731, 2001
- 16) 山中秀高, 小野 要: アミロイド沈着を伴う脾炎症性筋線維芽細胞腫瘍の1例: *日消外会誌* 39: 1695—1700, 2006
- 17) 松尾 浩, 山田卓也, 関野考史他: Hand-assisted laparoscopic surgery (HALS) 下に脾臓摘出術を行った脾炎症性偽腫瘍の1例. *日内視鏡外会誌* 11: 185—189, 2006
- 18) 児島 祐, 山下 潤, 藪内裕也他: 肝炎症性偽腫瘍の1例. *日臨外会誌* 62: 1242—1247, 2001

INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR OF THE SPLEEN

Taihei OSHIRO, Shinsuke IYOMASA, Takanori KYOKANE,
Yuichiro TOJIMA, Hidenari GOTO and Masao MATSUDA
Department of Surgery, Chukyo Hospital

On abdominal US a splenic mass was found unexpectedly in a 43-year-old male. During one year and six months of follow-up, the splenic mass grew to 20 mm in diameter and became lobulated. Malignant lymphoma was suspected, and a laparoscopic splenectomy was done. On histology, the tumor was diagnosed as an inflammatory pseudotumor.

The natural course of inflammatory pseudotumor of the spleen has only rarely been documented.