

肝の Inflammatory pseudotumor の 1 切除例

中山記念胃腸科病院

*東京女子医科大学消化器病センター放射線科

**東京女子医科大学消化器病センター外科

今里 雅之 林 恒男 田中 精一 上田 哲哉
竹田 秀一 山本 清孝 武藤 康悦 磯部 義憲*
上野 恵子* 山本 雅一** 小林誠一郎** 羽生富士夫**

症例は50歳男性で、主訴は心窩部痛である。胃潰瘍の診断とともに、超音波検査で肝右葉に蜂巢状内部構造を有する比較的境界鮮明な直径7cmの腫瘤を認めた。Computed tomography (CT) では腫瘤は低吸収域で造影後には菊花状で各花卉にあたる部位の辺縁が濃染される特異な像を呈した。腹部血管造影では、腫瘍血管や圧排所見はないが毛細管相で腫瘍濃染像を認めた。腫瘍マーカーは正常であった。腫瘍の穿刺吸引細胞診では、白色の濃汁の中に線維性組織が吸引されたが炎症性変化のみで悪性所見は認めないため嚴重な経過観察とした。2年後、画像的に腫瘤の増大が認められ、悪性腫瘍が否定できないために拡大肝右葉切除術を施行した。病理学的に inflammatory pseudotumor と診断された。肝原発の本疾患は文献上17例の報告しかなく、経過を追い増大を認めた症例はいまだ報告されていない。ここに文献的考察を加え報告する。

Key word: Inflammatory pseudotumor of the liver

1. はじめに

Inflammatory pseudotumor¹⁾ (以下 IPT と略す) は種々の臓器に発生する原因不明の腫瘍性病変でその報告例は少ない。われわれは良性肝腫瘤として経過観察中、22か月後に CT 画像上著明に増大したため悪性腫瘍を否定できず切除し、病理組織学的検索にて肝の IPT²⁾ の診断を得た 1 例を経験したので報告する。

2. 症 例

患者: 50歳, 男性。

主訴: 心窩部痛。

既往歴: 昭和56年トラックのドアで右側腹部を強打し2週間程右側腹部痛が持続した。

現病歴: 昭和60年12月頃より心窩部痛あり。当院受診し胃潰瘍の診断とともに、超音波検査にて肝の腫瘤を指摘された。昭和61年2月精査目的にて入院し、肝腫瘤に対し超音波ガイド下に穿刺吸引細胞診を施行した。白色の濃汁のなかには線維性組織が吸引されたが、炎症性変化のみで悪性像を認めないため、嚴重な経過観察とした。昭和62年12月肝腫瘤の増大があり、悪性

腫瘍を否定できないため手術目的にて再入院となった。

入院時現症: 身長166cm, 体重49kg, 血圧130/70 mmHg, 脈拍70/分・整, 体温36.5℃体格中等度で、貧血, 黄疸はない。腹部は平坦・軟, 肝, 脾は触知しない。表在リンパ節も触知しない。

血液生化学検査成績:

初回入院時: 白血球数9,300/mm³, 核の軽度左方移動あり。ALP 563mU/ml, r-GTP 77mU/ml, LAP 253 U と胆道系酵素の軽度上昇を認めた。α-Fetoprotein (以下 AFP) は2ng/ml と正常であった。

再入院時: 白血球数は正常範囲であるが, ALP 1,202mU/ml, γ-GTP 125mU/ml, LAP 309U と胆道系酵素は初診時よりさらに上昇した。GOT, GPT は異常なく, carcinoembryonic antigen (以下 CEA) 0.8 ng/ml, AFP 3.0ng/ml と正常であった (Table 1)。

超音波検査所見: 肝右葉前区域中心に大小の低エコー域の集簇を示す比較的境界明瞭な長径7cm 大の占拠性病変を認めた (Fig. 1)。

腹部 CT 検査: 肝右葉に低吸収域があり、造影後の CT で腫瘤は増強され、菊花状の特異な像を呈した。Fig. 2a, b は22か月前で Fig. 2c, d が術直前のもので

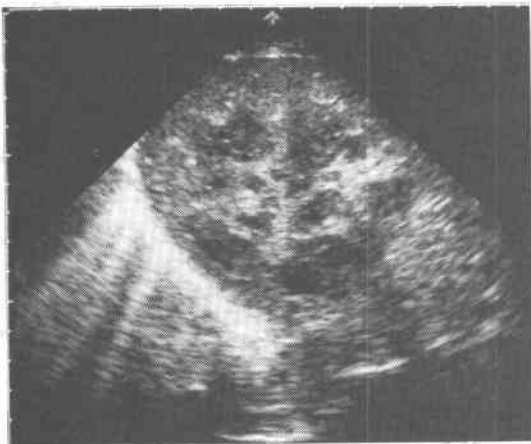
<1989年10月11日受理> 別刷請求先: 今里 雅之
〒192 八王子市子安町3-18-1 中山記念胃腸科
病院

Table 1 Laboratory data

	a)	b)		a)	b)		
RBC	438	453	×10 ⁴ /mm ³	GOT	17	17	mU/ml
Hb	12.1	11.0	g/dl	GPT	9	10	mU/ml
Ht	35.4	34.0	%	LDH	243	363	U
WBC	9300	7500	/mm ³	γ-GPT	77	125	mU/ml
Stab	5.0	9.0	%	LAP	253	309	U
Seg	58.0	70.0	%	CHE	896	672	mU/ml
Lym	34.0	16.0	%	Na	140	145	mEq/l
Mon	1.0	4.0	%	K	3.9	4.3	mEq/l
Eos	1.0	0.0	%	Cl	101	98	mEq/l
Bas	1.0	1.0	%	BUN	11	12	mg/dl
Plt	44.0	43.4	×10 ⁴ /mm ³	Cre	0.7	0.8	mg/dl
TB	0.3	0.4	mg/dl	AMY	179	169	IU/l
TP	7.1	6.3	g/dl	TTT	2.6	0.5	U
Alb	3.6	3.4	g/dl	ZTT	7.8	0.4	U
T-CHO	145	148	mg/dl	HbsAg	(-)		
TG	75	69	mg/dl	AFP	2.0	3.0	ng/dl
ALP	565	1202	mU/ml	ICG		12.7	%

a) on the first admission, 1986.2.4 b) on the second admission, 1987.12.22

Fig. 1 Ultrasonography shows the multiple low echoic areas in the right lobe of the liver



あるが、スキャンされているレベルはともに腫瘍の最大径である。長径で7.2cmから8.5cmと増大していることが分かる。

腹部血管造影所見：右肝動脈の前上区域枝の末梢に屈曲、蛇行が認められるが、腫瘍血管や圧排所見は認めない。毛細管相では同部位に淡い辺縁不明瞭な腫瘍濃染像が認められる。門脈相では前上区域枝が描出されていない (Fig. 3)。

以上の画像診断および経過より、肝の悪性腫瘍特に

肝内胆管細胞癌なども否定できないため手術を行った。

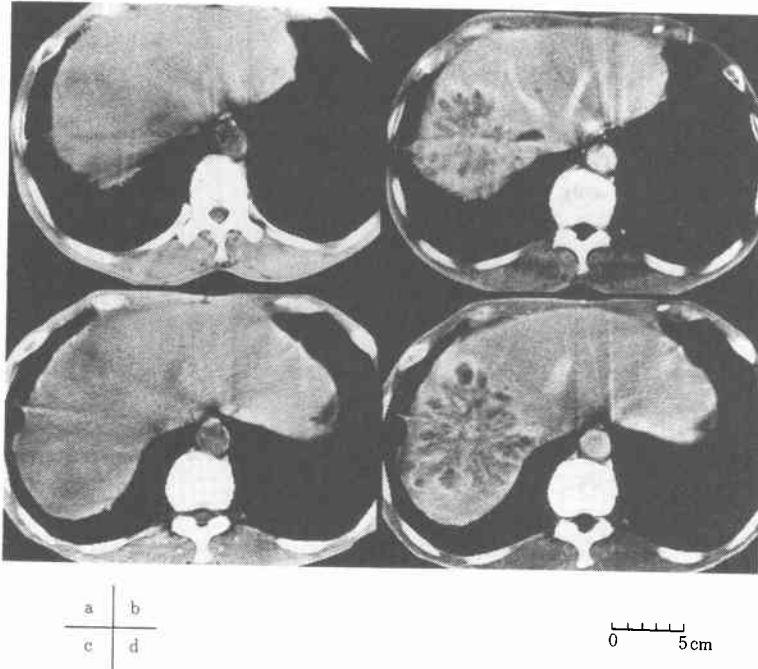
手術所見：上腹部横切開に正中切開を加えて開腹した。肝表面は赤褐色、平滑であり、肝右葉に手拳大の腫瘍を認め、その腫瘍は横隔膜へ直径10数cmにわたり強く癒着していた。横隔膜との癒着部位を剝離して行くと少量の膿汁が流出し、下大静脈近傍および右肝静脈根部にも硬い組織を認めた。悪性腫瘍としても根治手術は不可能と考え、横隔膜は合併切除せず拡大肝右葉切除にて腫瘍を摘出した。

病理肉眼所見：摘出標本剖面では、7.5×7.0cm大の腫瘍が認められた。これは黄白色の小さな腫瘍が放射状に集簇して、全体として比較的境界明瞭な菊花状の腫瘍を形成していた。花卉に当たる小腫瘍の中心部には黄褐色の壊死部が認められた。非腫瘍部の肝にはうっ血の強い部分と混濁腫脹した部分とが認められた (Fig. 4)。

病理組織学的所見：腫瘍は、多数の炎症細胞を含む線維性の組織が融合し、全体として大きな腫瘍を形成していた。腫瘍の所々には凝固壊死部があり、その壊死部の硝子様変性を生じた部位には紡錘型の epitheloid cell が柵状に配列していた。その外側には膠原線維と線維芽細胞からなる結合織の層があり、その間質には多数のリンパ球と形質細胞が認められた。腫瘍中心部の太い門脈では内膜の線維化があり内腔の狭窄が

Fig. 2 Computed tomography shows the mass lesion in the right lobe of the liver. Plain CT scan (a) shows the low density area in the right lobe of the liver. Contrast enhanced CT (b) demonstrates the mass lesion composed of the low density area with peripheral enhancement. (a, b: on the first admission, February, 1986)

After 22 months, the size of the hepatic mass lesion which makes mosaic appearance increases obviously. (c, d: on the second admission, December, 1987)



みられ、腫瘍末梢側では同定されない細い門脈の門脈域が多数認められた。腫瘍周囲の肝組織は肝細胞が萎縮、脱落し腫瘍からの線維化の進展、増殖を認め、門脈域にはリンパ球を中心とした炎症性の細胞浸潤と細胆管の増生および軽度の線維化がみられた。非腫瘍部の肝組織は全般的に萎縮が高度であった (Fig. 5)。

以上の所見より、肝のIPTと診断した。術後経過は良好で、1年後の現在も元気に就労しており、CT検査では再発の所見は認められない。また血液検査でも胆道系酵素は正常化している。

3. 考 察

IPTはPlasma cell granulomaとも呼ばれ¹⁾、plasma cellを中心とした炎症細胞の浸潤と結合織の増生を特徴とする。Brunnら³⁾が、1939年に肺のplasma cell granulomaを発表後、報告例は肺原発がほとんどである。そのほかの原発臓器として、眼窩、耳下腺、胸膜、胃、腎、後腹膜などがある。

肝のIPTは1953年にPack²⁾が40歳男性の肝右葉に発生した1例を報告したのが最初である。以来文献的に検索しうるかぎりの17例の報告⁴⁾を認めるに過ぎない。

臨床症状として微熱、腹部不快感、体重減少があり、検査結果では白血球増多、血沈の上昇、高グロブリン血症などがあげられるが、いずれも特異的な所見は認めない⁵⁾。

腫瘍の部位を報告例でみると、右葉9例、左葉3例、両葉3例、肝門部2例であり、右葉にやや多い^{2)4)~6)}。

報告例の画像診断所見をみると、超音波検査は17例中5例に施行されており前田ら⁴⁾はモザイク状を示す境界明瞭な低エコー域と報告しているが、他の報告に特記すべき所見はない。CT検査は17例中3例に施行されているにすぎないが、山内ら⁶⁾は腫瘍が低吸収域で造影剤注入後病巣内に強いenhancementがみられ周囲にring状の低吸収域を認めたと報告しており、他

Fig. 3 Hepatic angiogram

a: Early arterial phase. The peripheral superior branches of the right hepatic artery are slightly torturous but there is no tumor vessel. b: Capillary phase. Tumor stain is seen in the right lobe. (arrow) c: Portal phase. The superior anterior branch is not detected.

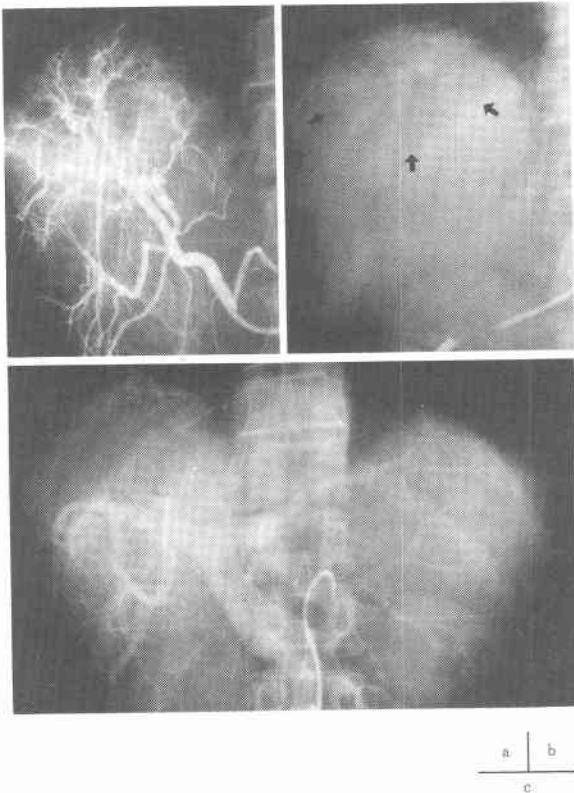


Fig. 4 Macroscopic view of the resected specimen shows that the tumor is just like chrysanthemum-leaf with yellowish and white color.

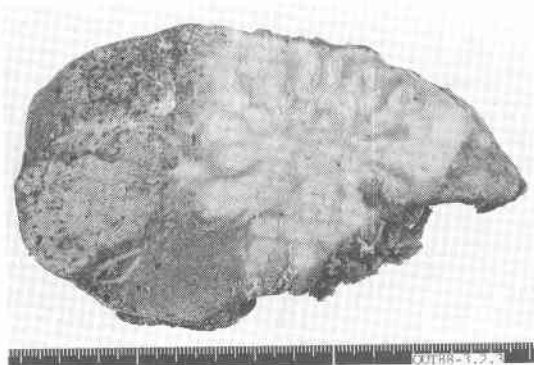
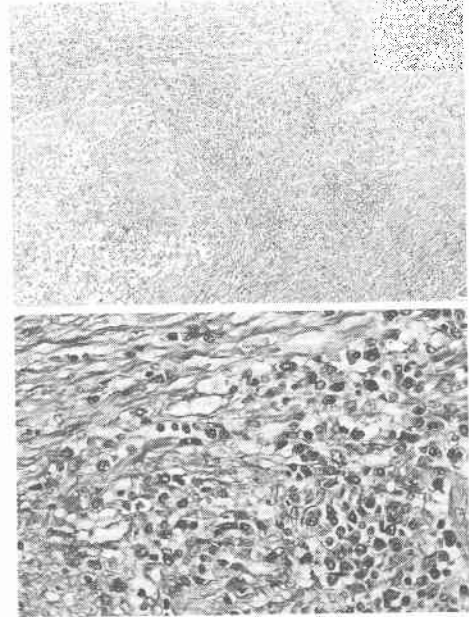


Fig. 5 Microscopic view shows that there are numerous lymphocytes and plasma cells in the connective tissue composed of collagen fibers and fibroblasts. (Haematoxylin and eosin).

(2.5×10)



(2.5×40)

の2例には低吸収域との記載で特徴的な所見は認められない。血管造影では特徴的な所見の記載はない⁶⁾。本症例では、腹部超音波検査で比較的境界明瞭な蜂巣状の多発低エコー域で、CT検査では単純CTが低吸収域として描出され、造影後では菊花状で各花卉に当たる部位の辺縁が濃染されるきわめて特異な像を呈していた。このような特異な所見は今まで報告されていない。

病理組織学的には、本症例では腫瘍中心部の壊死が著明であった。このことがいままで報告された肝のIPTと組織所見が異なる点であり診断する上で問題となったが、線維化の部分を目ざすと今までの報告例と同様でありIPTと診断した。壊死が著明に認められたのは、主病巣の太い門脈枝が腫瘍に巻き込まれたことによる門脈血流遮断が強く影響しているものと考えられる。腫瘍の増大を来した理由は、門脈域に沿って炎症の拡大があることと腫瘍周辺の肝組織の線維化が進行していることによると推察される。

肝のIPTの報告例中、このように経過を追い腫瘍の増大を認めたものはない。

本疾患の原因として感染、免疫学的機序の可能性が示唆されているが定説はない⁵⁾⁶⁾。本症例は、4年前に右側腹部を強打した既往があり、本症の誘因となっている可能性も否定できないが、確証はない。

治療については、報告例の多くは悪性腫瘍の疑いで肝切除を施行されているが、腫瘍の自然退縮例も報告されており、肝切除の妥当性についてはまだ結論をみていない。

画像診断上特徴的な所見は認められていない現在、悪性腫瘍との鑑別はたいへん困難なものと考えられる。本症例のように腫瘍の穿刺吸引細胞診で悪性細胞が認められなくとも経過中腫瘍の増大が認められる例では、肝切除を施行せざるをえないと思われる。

本論文の要旨は第201回日本消化器病学会関東地方会で報告した。

稿を終えるにあたり、病理組織診断にて多大なご指導頂きました東京都立衛生研究所病理部の中野雅行先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Bahadori M, Liebow AA: Plasma cell granulomas of the lung. *Cancer* 31: 191-208, 1973
- 2) Pack GT, Baker HW: Total right hepatic lobectomy. Report of a case. *Ann Surg* 138: 253-258, 1953
- 3) Brunn H: Two interesting benign lung tumors of contradictory histopathology: Remarks on the necessity for maintaining the chest tumor registry. *J Thorac Cardiovasc Surg* 9: 119-131, 1939
- 4) 前田正人, 酒井義法, 小山 恒ほか: 肝のInflammatory pseudotumorの1例. *肝臓* 29: 546-550, 1988
- 5) Anthony PP, Telesinghe P: Inflammatory pseudotumor of the liver. *J Clin Pathol* 39: 761-768, 1986
- 6) 山内禎祐, 古井 滋, 大友 邦ほか: 肝Inflammatory pseudotumorの1例. *臨放線* 30: 1505-1508, 1985

A Case of Inflammatory Pseudotumor of the Liver which Increased on Ultrasonography and Computed Tomography

Masayuki Imazato, Tsuneo Hayashi, Seiichi Tanaka, Tetsuya Ageta, Shuichi Takeda, Kiyotaka Yamamoto, Yasuyoshi Takeo, Yoshinori Isobe*, Eiko Ueno*, Masakazu Yamamoto**, Seiichiro Kobayashi** and Fujio Hanyu**
Nakayama Memorial Hospital

*Department of Radiology, Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College

**Department of Surgery, Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College

We report a case of inflammatory pseudotumor of the liver, for which a right extended lobectomy was performed. The patient was a 50-year-old man with epigastric pain. Endoscopy revealed a gastric ulcer and ultrasonography revealed out a tumor for the liver. Computed tomography (CT) showed a low density area in the right lobe of the liver. Contrast enhanced CT demonstrated a mass lesion composed of the low density areas with peripheral enhancement which gave a mosaic appearance. Aspiration biopsy of the tumor was performed, and then no malignant cells were found in the specimen except for the fibrous tissue. After 22 months, a CT scan showed that the size for the hepatic mass had definitively increased. An operation was performed and pathological findings showed that the tumor was an inflammatory pseudotumor.

Reprint requests: Masayuki Imazato Nakayama Memorial Hospital
3-18-1 Koyasu-cho, Hachioji, 192 JAPAN