

## 脾原発 inflammatory pseudotumor の 1 例

深川市立総合病院外科, 北海道大学第 1 外科\*

斉藤 功 渡辺 健一 高橋 周作 米山 重人  
福島 剛 中野 詩朗 松下 通明\* 内野 純一\*

症例は69歳の男性。脳梗塞の既往があり、定期検査でアミラーゼ高値の指摘を受け精査目的に入院。超音波検査にて脾門部に直径39mmの低エコー腫瘍が認められた。CT検査では、単純CTにて脾臓の辺縁にやや不鮮明な低吸収域が存在し、造影CTでは腫瘍部はほとんど enhance されなかった。dynamic CT では腫瘍部は hypovascular, delayed enhancement を認めた。MRI 検査で、腫瘍は T1 強調画像で high signal intensity area, T2 強調画像で low signal intensity area として認められた。Gadtrinium-DTPA の dynamic study は latephase で enhancement を認めた。血管造影では、明らかな腫瘍濃染は認めなかった。以上より、脾血管腫、過誤腫などを強く疑うも、悪性リンパ腫なども否定できず、手術を施行した。摘出脾内には、3.8×3.5cm の白色隆起性病変を認めた。病理診断は、脾原発 inflammatory pseudotumor であった。

**Key words:** inflammatory pseudotumor, splenic tumor

### はじめに

Inflammatory pseudotumor (以下、IPT と略記) は極めてまれな疾患であり、国際的な報告をみても1995年現在23例にすぎず、本邦ではわずか12例の報告があるのみである。したがって、脾腫瘍を術前に本症と確定診断を下すには困難を伴うのが現状である。我々は自験例で血清ならびに尿中の高アミラーゼ値の原因を精査中に、偶然脾腫瘍を認め確定診断が得られぬままに手術を施行し、病理学的に脾原発 IPT と診断された症例を報告し、文献的考察を加えた。

### 1. 症 例

患者：69歳、男性

主訴：アミラーゼ値異常高値

既往歴：65歳時に脳梗塞。

家族歴：父親が脳卒中にて死亡。

現病歴：脳梗塞発症後、当院内科外来通院中に血清および尿中アミラーゼ値の異常高値を指摘され、腹部超音波検査(以下、US と略記) computed tomography (以下、CT と略記) などの諸検査を施行したところ、脾臓に腫瘍を認め、平成6年3月17日に当科へ紹介され入院となった。

入院時現症：身長168.3cm、体重54.0kg、血圧160/

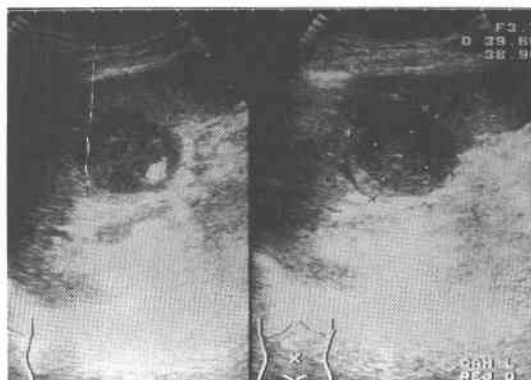
90mmHg。胸腹部、頭頸部に異常を認めなかった。右半身に不全麻痺を認めた。

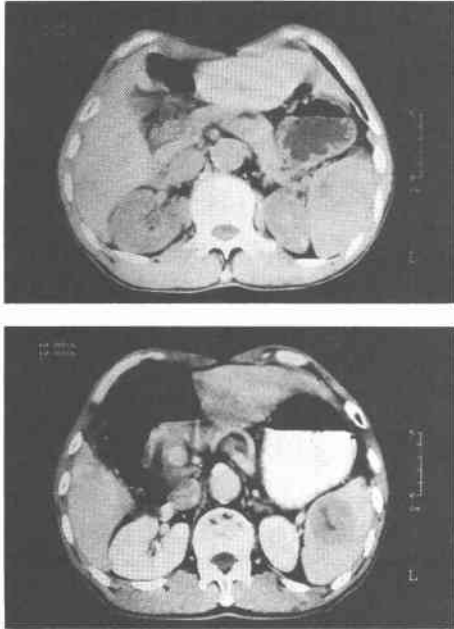
入院時検査所見：血清および尿中アミラーゼ値はそれぞれ300IU/L, 1,295IU/L, 血清 CEA 値5.1ng/ml と軽度の上昇を認めた。WBC RBC および CRP を含めて他の検査所見には異常を認めなかった。

腹部 US 所見：脾に直径39mm、辺縁は整、内部不均質な腫瘍で、周辺低エコーで、内部高エコーを呈していた (Fig. 1)。

腹部 CT 所見：単純 CT にて脾臓の辺縁にやや不鮮

**Fig. 1** Abdominal ultrasonography: Well defined hypoechoic mass with diameter of 39mm is noted in the spleen.





**Fig. 2** Plain abdominal CT scan (top) : Indistinct low density area in the spleen. Enhanced abdominal CT scan (bottom) : No enhancement of the area is observed.

明な低吸収域がみられ、造影 CT で腫瘍部はほとんど enhance されなかった (Fig. 2)。

Dynamic CT 検査所見：指摘された同部位は、hypovascular で delayed enhancement をわずかに認めた (Fig. 3)。

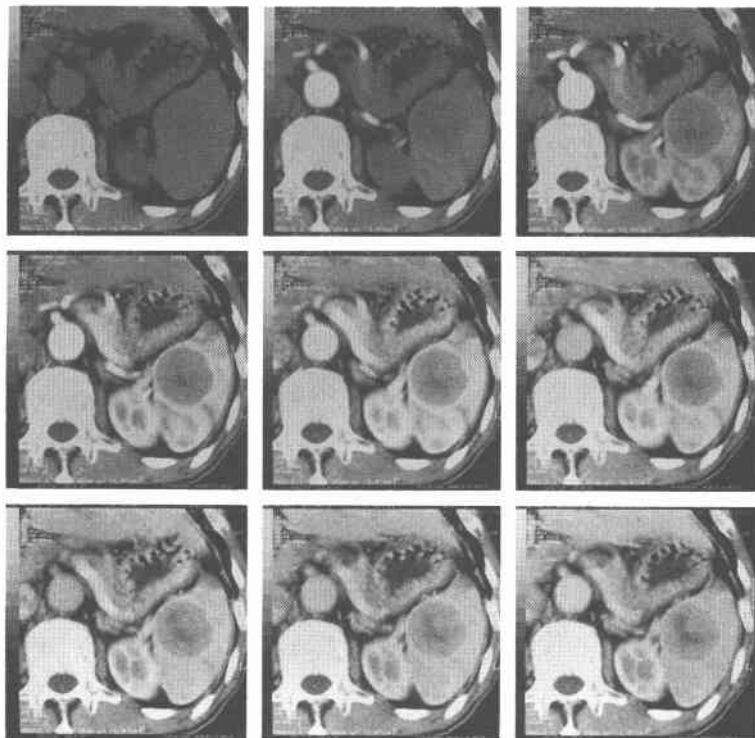
腹部血管造影所見：腫瘍血管を軽度認めるのみで、明らかな腫瘍濃染は認められなかった。

腹部 magnetic resonance imaging (以下、MRI と省略) 検査所見：脾腫瘍は、T1強調画像で high intensity area として認められ、T2強調画像では low intensity area として認められた。Gadtrinium-DTPA にて軽度の造影効果を認めた (Fig. 4)。

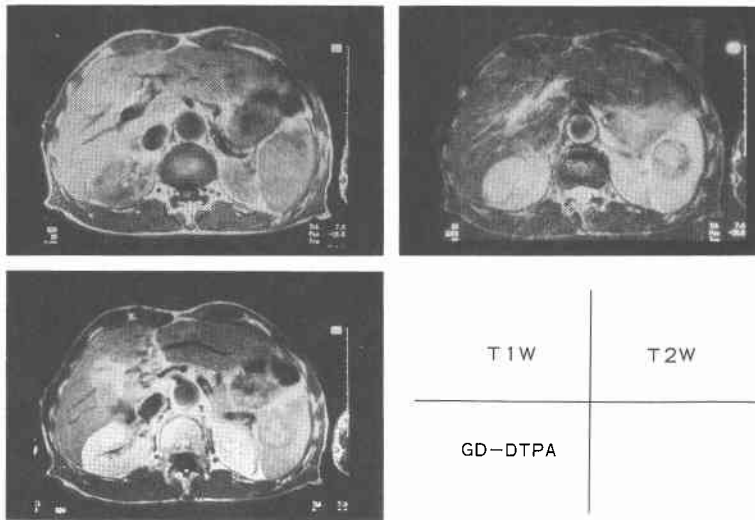
Garium シンチ検査所見：同部位には異常集積像を認めなかった。

以上の所見より、脾臓に発生したほぼ球形辺縁明瞭

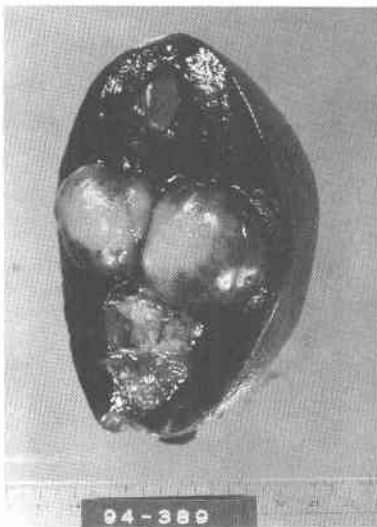
**Fig. 3** Dynamic abdominal CT scan : Low grade of delayed enhancement of the area is noted at the hypovascular phase.



**Fig. 4** MRI (T1 weighted image) : Cross section reveals slightly high intensity area in the spleen. MRI (T2 weighted image) : Cross section of the mass reveals low intensity area. Gadtrinium-DTPA : Slight up-take in to the mass is observed.



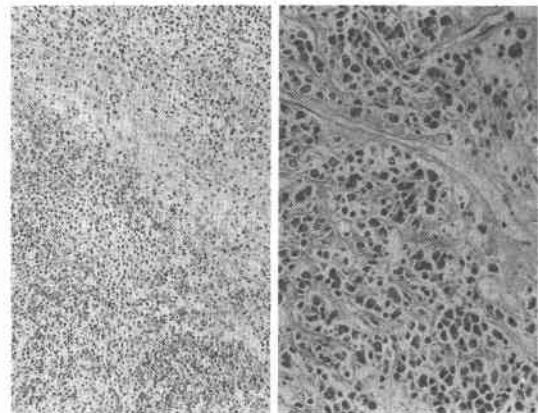
**Fig. 5** Cut surface of the removed spleen : A well circumscribed gray-white colored mass at the splenic hilus shows with capsule formation.



な hypovascular tumor で、血管腫、過誤腫をはじめとする良性腫瘍を第1に考えたが、悪性リンパ腫を含めた悪性腫瘍を画像診断上で完全に否定することは困難であったため、同年3月25日に手術を施行した。

開腹時所見：左肋弓下切開にて開腹。腹水なく、肝臓、胃、腎臓および大・小腸に異常を認めず、リンパ

**Fig. 6** Histology : (left) An increase in vessels and fibroblasts is noted. (Hematoxylin and eosin,  $\times 150$ ) (right) Infiltration of plasma cells and lymphocytes is the characteristic findings. (Hematoxylin and eosin,  $\times 300$ )



節の腫脹も認めなかった。脾臓は周囲組織との癒着なく、摘出は容易であったが、悪性腫瘍も否定できなかった。脾動静脈は可及的脾体部側にて処理した。

切除標本所見：摘出脾重量290g、断面にて脾門部に3.8 $\times$ 3.5cmの境界明瞭で比較的均一な白色結節性の腫瘤を認め、腫瘤周囲には明瞭な被膜形成を認めた (Fig. 5)。

病理組織学的所見：組織学的には、血管の増生と線維芽細胞の増殖からなり、その間に多数の plasma cell や lymphocyte 浸潤を認めた。また、部位により、macrophage の集簇や線維増殖も見られた。これらの所見から、腫瘍は炎症性肉芽組織よりなる IPT, plasma cell granuloma type と診断された (Fig. 6)。

術後経過：術後経過は良好であり、同年4月20日に退院した。術後11か月の現在元気に社会復帰を果たしている。

## 2. 考 察

脾臓の IPT を最初に報告したのは、1984年 Cotelingam ら<sup>1)</sup>である。その後の画像診断などの発達により報告例増加の傾向はあるものの、佐々木ら<sup>2)</sup>の最近の世界集計によると、19例にすぎない。我々の集計では、国際報告例23例、本邦報告例12例であった (Table 1)。

本症の組織像は Someran<sup>12)</sup>により、1) xantho-granuloma type, 2) plasma cell type, 3) sclerosing pseudotumor の3型に分類される。これまでの報告例によると、脾原発 IPT では plasma cell type が多く、本邦例もこの傾向にあった。

本症の発生部位としては、肺に最も多く、ほかに眼、口腔内鼻咽頭、軟部組織、消化器系、中枢神経系、泌尿生殖器系の報告がみられる<sup>3)</sup>。原発性脾良性腫瘍は、血管腫、脾嚢胞、リンパ管腫、過誤腫が一般的であり、悪性腫瘍では Hodgkin 病を含む悪性リンパ腫、血管肉腫、転移性悪性腫瘍との鑑別診断が問題となる。とりわけ、脾臓原発の悪性腫瘍のなかで頻度の高い悪性リンパ腫との鑑別に難渋する<sup>13)</sup>。

本症には診断の契機となる臨床上的特定の症状は認

められていない。他の診断契機として、血液検査では、貧血のほか、leukocytosis が多く、polyclonal な高  $\gamma$ -globulin 血症、血小板減少と抗血小板抗体や高 Ca 血症も報告されているが共通性にとぼしい<sup>8)</sup>。Tumor marker は、本症を含めてほかに1例の serum carcinoembryonic antigen (CEA) 高値 (5.3ng/dl) の記載があるが、特異性に欠ける<sup>11)</sup>。

我々の症例では、外来検査時の血中ならびに尿中の高アミラーゼ所見が検索の契機となったが、endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) にて主膵管の拡張を認め、術後もアミラーゼ高値が持続していることより慢性膵炎によるものと思われた。

画像診断では超音波診断が splenic mass の検出に有効であり、一般に low echoic mass として観察されるとされているが<sup>14)~16)</sup>、本症例でもこの所見が認められた。単純 CT では、low density mass として、enhanced CT では、non-enhanced mass として検出される<sup>9)10)15)</sup>。

血管造影検査については、vascularity が陽性的の場合や、陰性例、または異常な feeding artery を認めないとする報告がある<sup>7)14)</sup>。

MRI では T1強調画像にて low intensity, T2強調画像にて high intensity, Gadtrinium 負荷後の T1強調画像で軽度の強調効果との記載がなされている<sup>10)15)17)</sup>。

現在のところ、IPT の術前における質的診断は困難であり、確定診断は術後の病理診断による。また本症の病因が現在不明であるため、悪性腫瘍否定のためにも発見時の脾摘が唯一の治療法であるのが現状である

**Table 1** Summary of examples of inflammatory pseudotumor of the spleen in Japan (1985–1994)

Case	Age	Sex	Spleen weight (g)	Tumor size (cm)	Histology	Reference
1 (1985)	50	M	205	6×4.5×4	L, P	3
2 (1991)	81	M	140	5.5×5×5	L, P	4
3 (1991)	50	M	255	4.5×4.0×4.5	P, L	5
4 (1992)	67	F	380	6×7	L, P	6
5 (1992)	32	M	656	14.5×13×13	L	7
6 (1992)	39	M	ND	2.6×3.1×3.1	P	8
7 (1993)	45	F	45	1.5×1.5×1.5	P, L, H	2
8 (1993)	53	M	110	5×5×5	L, P	9
9 (1993)	43	F	ND	6×6×8	P	10
10 (1993)	39	F	ND	2.7×2.5	P	10
11 (1993)	60	M	520	10×8×7	P	11
12 (1994)	69	M	290	3.8×3.5	P, L	present case

ND: No data, P: Plasma cell, L: Lymphocyte, H: Hystiocyte

う。本症は良性疾患であり、術後の予後は良好であるが、画像診断学的または免疫学的などの術前診断の確立が今後の課題と考えられる。

稿を終えるにあたり、本症の病理組織学的所見の御指導、御校閲をいただきました北海道大学病理学第2講座助教授藤岡保範先生ならびに症例を御教示下さいました深川市立総合病院内科医長森本英雄博士に深謝いたします。

#### 文 献

- 1) Cotelingam JD, Jaffe ES: Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Am J Surg Pathol* 8: 375-480, 1984
- 2) 佐々木なおみ, 谷山清己, 青木 潤ほか: 脾原発 inflammatory pseudotumor の1例—症例報告と文献的考察—. *病理と臨* 12: 253-257, 1993
- 3) 三澤一仁, 上泉 洋, 西部 学ほか: 脾の Inflammatory pseudotumor の1例. *日消病会誌* 82: 1798-1802, 1985
- 4) 岩淵三哉, 渡辺英伸, 石原法子ほか: 脾の炎症性偽腫瘍. *病院管理* 9: 135, 1991
- 5) Tomita K, Ohta G, Iarashi M et al: A case of splenic inflammatory pseudotumor. *Gastroenterd Jpn* 26: 783-787, 1991
- 6) 田中承男, 松井 英, 関川 進ほか: 脾の inflammatory pseudotumor の1例. *大阪医誌会誌* 26: 114-116, 1992
- 7) 小池和彦, 西里卓次, 井原康二ほか: 脾原発炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) の1例. *日消病会誌* 89: 1547-1551, 1992
- 8) Inada T, Yani T, Shima S et al: Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Int Med* 31: 941-945, 1992
- 9) 加藤誠也, 野原正敏, 船津仁之ほか: 脾原発 Inflammatory pseudotumor の1例. *久留米医会誌* 56: 1327-1334, 1993
- 10) 可知謙治, 大友 邦, 門澤秀一ほか: 脾 inflammatory pseudotumor のCT, MRI 所見. *臨放線* 38: 669-674, 1993
- 11) Natsugoe S, Ohwaki T, Tsubouti H et al: Inflammatory pseudotumor of the spleen: Report of a case. *Jpn J Surg* 23: 246-250, 1993
- 12) Someran A: "Inflammatory pseudotumo" of the liver with occlusive phlebitis. *Am J Clin Pathol* 69: 176-181, 1978
- 13) Cuevas E, Ortiz-Hidalgo C, Oliva H et al: Primary pleomorphic t-cell lymphoma of the spleen. *Leuk Lymphoma* 9: 265-267, 1993
- 14) Glazer M, Sagar V: SPEC Imaging of the spleen in inflammatory pseudotumor. Correlation with ultrasound, CT, and MRI. *Clin Nucl Med* 18: 527-529, 1993
- 15) Inada T, Yano T, Shima S et al: Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Intern Med* 31: 941-945, 1992
- 16) Glazer M, Lally J, Kazer M: Inflammatory pseudotumor of the spleen: MR findings J *Comput Assist Tomogr* 16: 980-983, 1992
- 17) 門澤秀一, 荒木 力: 脾のMRI. *臨消内科* 8: 1713-1723, 1993

#### A Case of Inflammatory Pseudotumor of the Spleen

Isao Saitoh, Kenichi Watanabe, Shusaku Takahashi, Shigehito Yoneyama,  
Tsuyoshi Fukushima, Shirou Nakano, Michiaki Matsushita\*  
and Junichi Uchino\*

Department of Surgery, Fukagawa Municipal General Hospital

\*First Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine

A case of inflammatory pseudotumor of the spleen is reported. During observation of the course of cerebral infarction at the Department of Medicine, Fukagawa Municipal General Hospital, a 69-year-old male patient was found to have high levels of serum and urine amylase. Abdominal examinations by ultrasonography, computed tomography, magnetic resonance imaging, scintigraphy and angiography showed a hypovascular spherical mass with a diameter of 39 mm at the hilus of the spleen. Under a preoperative diagnosis of benign tumor such as hemangioma or hamartoma and with some possibility of a malignant tumor, splenectomy was performed on March 25, 1994. Macroscopically, the tumor (3.8 × 3.5 cm) was white and nodular, with surrounding capsule. The tumor was diagnosed histologically as a plasma cell granuloma type of inflammatory pseudotumor. The patient was discharged from the hospital in good condition on April 20, 1994.

**Reprint requests:** Isao Saitoh Department of Surgery, Fukagawa Municipal Hospital  
5-6-10 Fukagawacity, Hokkaido, 074 JAPAN