

横隔膜下膿瘍を伴った肝 inflammatory pseudotumor の1例

岡山大学第2外科

松本 英男 平井 隆二 太田 徹哉 大橋龍一郎
川崎 誠治 土井原博義 曾我 浩之 清水 信義

横隔膜下膿瘍を伴った肝の inflammatory pseudotumor を経験したので報告する。症例は62歳の男性で、38°Cを越える発熱と右季肋部痛を主訴として入院した。白血球16,200/ μ l, CRP 11.8mg/mlと炎症所見が著明であった。腹部超音波検査で、右横隔膜下の液体貯留と肝後区域に多房性の境界不明瞭な径約5cmの低エコー域を認めた。CT, MRIでも同様の所見であった。横隔膜下膿瘍を伴った肝膿瘍を疑い、膿瘍ドレナージを試みた。10日後のCTでは、homogeneous hypodense massに変化していた。経皮的針生検で悪性腫瘍も否定できないため、肝後区域の部分切除を行った。病変は充実性の腫瘤であり、組織学的に炎症性偽腫瘍と診断された。肝膿瘍から炎症性偽腫瘍に移行し、感染を契機に発症したと考えられた。

Key words: inflammatory pseudotumor of liver, subphrenic abscess

はじめに

炎症性肝腫瘤の鑑別診断として、inflammatory pseudotumor (以下、IPT)が報告されるが、その成因については、いまだに明らかではない。

今回、横隔膜下膿瘍を伴った肝のIPTを経験し、肝膿瘍との関連が示唆されたので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者62歳、男性

主訴：発熱、右季肋部痛

家族歴：特記すべきもの無し。

既往歴：平成6年2月事故による右手指切断時に糖尿病とC型肝炎を指摘された。

現病歴：平成6年7月、38°Cの発熱と、右上腹部の圧迫感を主訴として近医を受診した。その後も発熱が続き、腹部超音波検査で横隔膜下膿瘍と肝後区域のhypoechoic areaを指摘され、横隔膜下膿瘍を伴った肝膿瘍と診断され平成6年9月22日、当科へ紹介入院となった。

入院時現症：身長170cm、体重65.5kg、血圧132/70 mmHg、脈拍92/分・整、体温37.5°C、体格中等度で、貧血・黄疸は認めず、体表のリンパ節は触知しなかった。呼吸音は清で心雑音も聴取しない。腹壁は平坦で

軟。肝・脾は触知しなかった。右季肋部に自発痛と軽度の圧痛を認めた。腹膜刺激症状は認めなかった。

入院時検査所見：WBC 16,200/ μ l, CRP 11.8mg/dlと高値を示し、膠質反応の上昇と低蛋白、低アルブミン血症を認めた。AFP, PIVPA-IIは正常値であった。ICG 15分値は44%と不良であった。

Ultrasonography：右横隔膜下の腹水と肝S6を中心に境界不明瞭な径約5cmのhypo~iso echoic lesionを認めた (Fig. 1a)。

Computed tomography：紹介医ではCTで右横隔膜下の腹水と肝後下区域に多房性のlow density areaを認めた (Fig. 2a)。10日後のCTでは多房性構造は消失し、均一なlow density areaとして描出され、造影CTのdelayed phaseで周囲が淡く染まるだけであった (Fig. 2b)。

Magnetic resonance imaging：T1強調像ではhypointensity, T2強調像で周囲にhyperintense rimを伴うhyper-iso-hypointensityの混在として描出された (Fig. 3a)。

Gadoliniumを用いたT1強調像では多房性にenhanceされ (Fig. 3b)、肝膿瘍を疑う所見であった。

肝膿瘍の診断で、9月28日経皮的に病変を穿刺し造影を試みると肝内に多房性の病変を認め、造影剤が横隔膜下へ流出貯留するのを認めた (Fig. 4)。病変部の針生検を施行後、経皮的横隔膜下膿瘍ドレナージを行ったがドレナージは不良で、炎症所見が遷延するた

Fig. 1 (1a) Abdominal Ultrasonography on admission revealed hypo-isoechoic lesion with 5 cm in diameter in the posteroinferior segment of the liver. Some fluid pooling was accompanied in the subphrenic space. (1b) One month later the lesion changed to homogeneous hypoechoic mass.

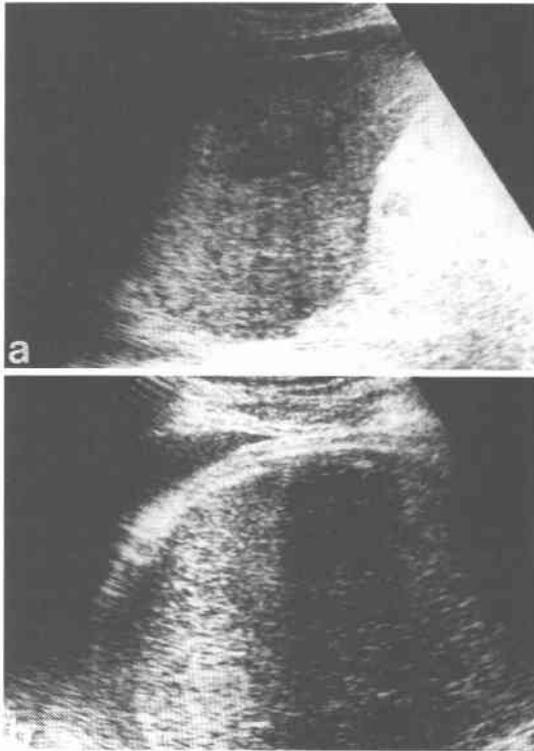
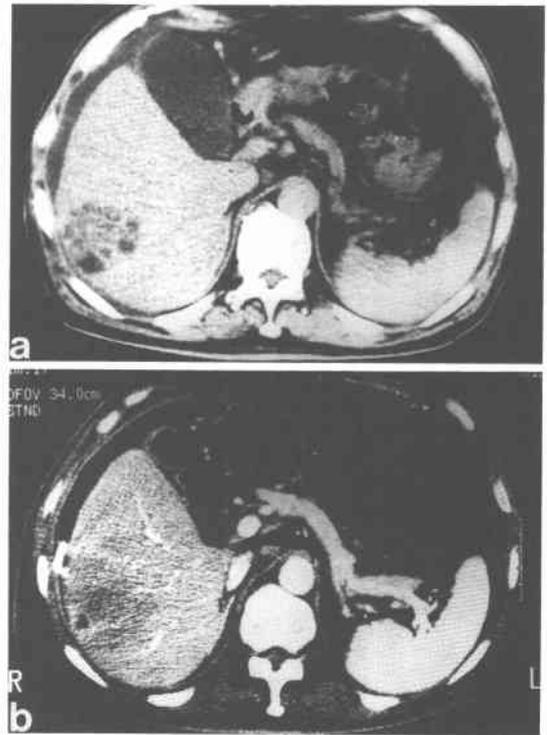


Fig. 2 (2a) Contrast enhanced abdominal CT scan revealed hypoattenuating multiloculated mass in the posteroinferior segment of the liver. (2b) Contrast enhanced CT scan (delayed phase) shows homogeneous hypoattenuating mass with a rim-like enhancement.



め10月3日に開腹ドレナージを行った。

手術所見：横隔膜と肝表面は肥厚したフィブリン様の物質に覆われ、液体の貯留はほとんどなく、これを洗浄ドレナージした。細菌培養では菌を認めなかった。

肝針生検：リンパ球および形質細胞浸潤を伴った線維症と一部脂肪沈着した肝細胞がみられた。線維症の中には軽度の細胞異型と構造異型を呈した管腔が散在していたので、胆管細胞癌も否定しえない所見であった (Fig. 5)。

US：入院後1か月の腹部USでは、肝内の低エコー領域の径に変化は無いが、均一明瞭に描出された (Fig. 1b)。

血管造影：全身状態の改善をまって血管造影を施行したがS⁶に淡い tumor stain を認めたのみで、ほかに所見は認めなかった (Fig. 6)。

ICG15分値は44%と不良であった。

横隔膜下膿瘍を伴った胆管細胞癌も否定できず、10月31日に肝後区域の部分切除術を施行した。

手術所見：肝は横隔膜と強固に癒着しており剥離に難渋した。肝後下区域の部分切除を行った。切除標本では、黄白色で均一な境界明瞭な腫瘤性の病変であった (Fig. 7)。

病理組織所見：明らかな被膜はなく、リンパ球と形質細胞の浸潤を伴った非特異的な慢性的肉芽腫性炎症の像が主体でIPTと診断された (Fig. 8)。背景の肝組織は、薄い隔壁と偽胆管の増生がみられ乙型肝炎変像を呈していた。

1年8か月を経過した現在も経過は良好である。

考 察

IPTは病理組織学的には plasma cell, fibroblast の浸潤を伴う結合織の増殖を特徴とする、良性疾患とされている。その原因は、細菌感染説¹⁾、自己免疫説²⁾³⁾胆管炎との関連^{4)~6)}、閉塞性静脈炎説³⁾⁷⁾などが考えられ

Fig. 3 (3a) T2 weighted MR imaging demonstrated hypo-isointense mass in the posteroinferior segment of the liver. (3b) Enhanced T1 weighted MR imaging demonstrated hypointense multiloculated mass with rim-like enhancement in the posteroinferior segment of the liver.

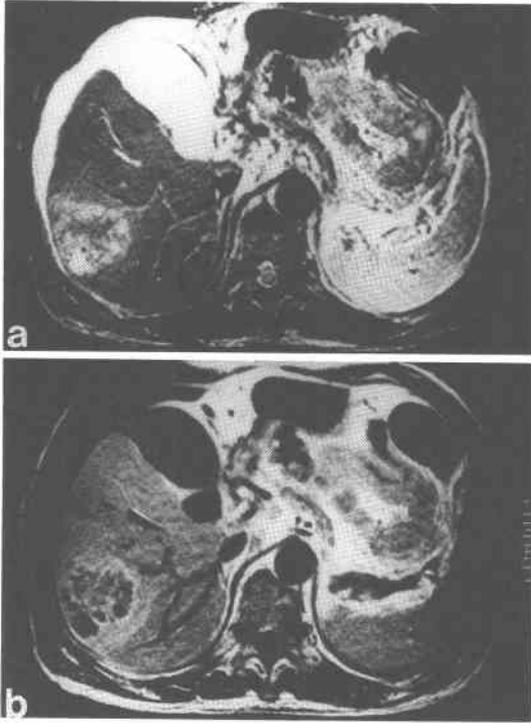


Fig. 5 Microscopic view of the needle biopsy specimen. ($\times 200$)

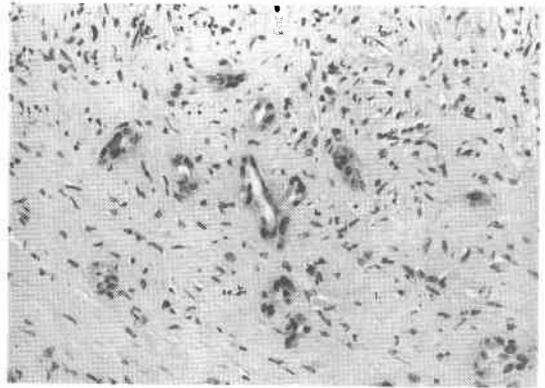


Fig. 6 Hepatic angiography demonstrated the fine staining lesion in the posterior-inferior segment.



Fig. 4 Percutaneous injection (\downarrow) of contrast medium into the liver mass was performed. The multiloculated mass and leakage (\downarrow) of the contrast medium into the subphrenic space was demonstrated.

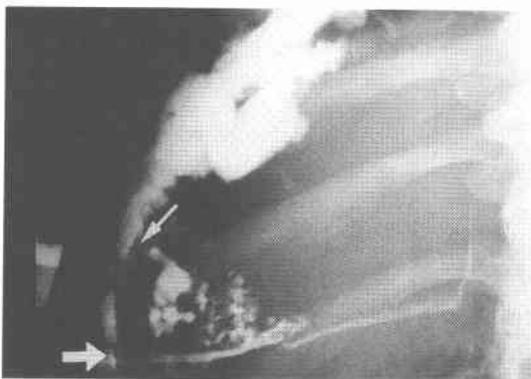


Fig. 7 The cutting surface of the tumor in the excised liver specimen appeared to be white-yellowish and homogeneous. The margin of the tumor was clear.

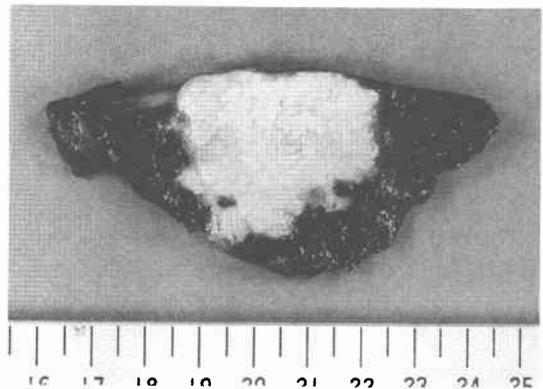
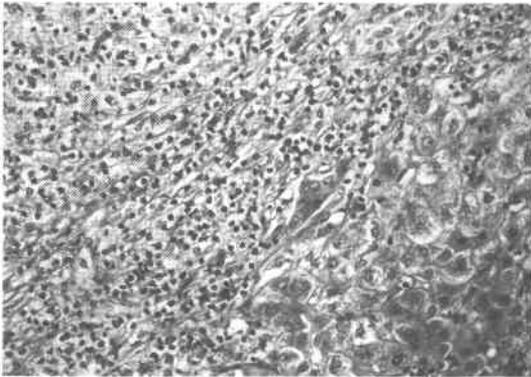


Fig. 8 The microscopic view of the tumor which had no capsule but the border was clear, revealed inflammatory pseudotumor with lymphocytes and plasma cell infiltration. ($\times 200$)



ているが、いまだ明らかではない。我々の調べた範囲では、横隔膜下膿瘍を伴った IPT の報告例はなく、本症例はその成因を類推する一助となりうると思われる。

本症例は穿刺生検時、初回開腹ドレナージ時の細菌培養では菌を検出できなかった。しかし、入院時の CT・MRI でも腫瘤内に胞巣状の low intensity area を認め、穿刺造影時にもわずかながらも腔を認めた。10日後の CT では、完全な充実性の病変として描出された。横隔膜下膿瘍を合併した肉芽腫性肝膿瘍⁹⁾が短期間に充実性の炎症性腫瘤に移行したと類推された。

既往に4か月まえの手指の切断はあるが、外傷との関連を示した報告はなく、感染の機会は明らかでない。

文献では、CT で low density を示すことが多く、造影されるものと造影されないものがある。MRI においては、T1強調像で hypointensity, T2強調像で iso~hyperintensity を呈することが多い。Fukuya ら⁹⁾は、造影した際 delayed-phase CT において周囲肝組織より強く造影され鑑別に有用であったと報告している。Abehsera ら¹⁰⁾は、線維化した組織が Control enhance CT において hypovascular, T2強調像での isointensity として描出され、さらに病変周囲の圧排された正常肝組織が T2強調像で hyperintense rim として描出され、肝血管腫や肝細胞癌とは異なる良性の病変と診断する根拠としている。

近年では、穿刺組織診断で確定診断を下し、抗生物質やステロイド、抗炎症薬の投与で保存的に軽快した症例の報告も多い^{11)~13)}。

いずれの報告でも経皮的針生検の重要性を強調しているが、リンパ腫、低分化肉腫、悪性線維性組織球腫、血管内皮腫などの鑑別は難しい¹⁴⁾とされている。本症例でも針生検は施行したものの、低分化型腺癌との鑑別が困難であり、確定診断をかねて部分切除を行った。画像上、胆管細胞癌、肝細胞癌の典型像ではなく、経時的に画像上の変化がみられ、臨床経過も炎症が落ちつつあったことから再度針生検を試みても良かったかもしれない。

肝腫瘤性病変に対する診断技術が飛躍的に向上するなか、診断の確定しにくい病変もある。炎症を伴う肝腫瘤性病変は、IPT をも念頭に置き画像診断、治療方針を検討することが必要であると思われる。

文 献

- 1) Lupovitch A, Chen R, Mishra S: Inflammatory pseudotumor of the liver. Report of the fine needle aspiration cytologic findings in a case initially misdiagnosed as malignant. *Acta Cytol* 33: 259-262, 1989
- 2) Anthony PP, Telesinghe PU: Inflammatory pseudotumor of the liver. *J Clin Pathol* 39: 253-258, 1986
- 3) Someren A: "Inflammatory pseudotumor" of liver with occlusive phlebitis. Report of a case in a child and review of literature. *AJCP* 69: 176-181, 1978
- 4) Nakajima T, Sugano I, Matsuzaki O: Hepatic inflammatory lesions Manifested as a pseudotumor. *Arch Pathol Lab Med* 117: 157-159, 1993
- 5) Hata Y, Sasaki F, Matsuoka S et al: Inflammatory pseudotumor of the liver in children: Report cases and review of the literature. *J Pediatr Surg* 27: 1549-1552, 1992
- 6) 平井隆二, 清水信義, 曾我浩之ほか: 肝 inflammatory pseudotumor の1例, 日消外会誌 27: 2587-2591, 1994
- 7) Horiuchi R, Uchida T, Kojima T: Inflammatory pseudotumor of the liver. Clinicopathologic study and review of the literature. *Cancer* 65: 1583-1590, 1990
- 8) 近藤啓史, 草野満夫, 小原充裕ほか: 肉芽腫性肝膿瘍の2症例. 肝・胆・膵 15: 1119-1127, 1987
- 9) Fukuya T, Honda H, Matsumata T et al: Diagnosis of inflammatory pseudotumor of liver: Value of CT. *Am J Roentgenol* 163: 1087-1091, 1994
- 10) Abehsea M, Vilgrain V, Belghiti J et al: Inflammatory pseudotumor of the liver:

- Radiologic-pathologic correlation. *J Comput Assist Tomogr* 19 : 80—83, 1995
- 11) Gollapudi P, Chejfec G, Zarling EJ: Spontaneous regression of hepatic pseudotumor. *Am J Gastroenterol* 87 : 214—217, 1992
- 12) Hakozaki Y, Katou M, Nakagawa K et al: Improvement of inflammatory pseudotumor of the liver after non steroidal anti-inflammatory agent therapy. *Am J Gastroenterol* 88 : 1121—1124, 1993
- 13) 久原尚子, 横川 泰, 道免和文ほか: 胆嚢癌合併先天性胆道拡張症の術後に肝 inflammatory pseudotumor を併発した1例. *日消病会誌* 91 : 2009—2015, 1994
- 14) Lim JH, Lee JH: Inflammatory pseudotumor of the liver. Ultrasound and CT features. *Clin Imaging* 19 : 43—46, 1994

Inflammatory Pseudotumor of the Liver with Subphrenic Abscess

Hideo Matsumoto, Ryuji Hirai, Tetsuya Ohta, Ryuichiro Ohashi, Seiji Kawasaki,
Hiroyoshi Doihara, Hiroyuki Soga and Nobuyoshi Shimizu
Second Department of Surgery, Okayama University School of Medicine

A 62-year-old man who developed a high fever and right hypochondralgia was referred to our hospital. Based on his laboratory data on admission, (WBC count of 16200/ μ l and CRP of 11.8 mg/ml), the patient was presumed to have severe inflammation. A multiloculated hypoechoic lesion, 5 cm in diameter, was detected ultrasonographically in the posteroinferior segment of the liver accompanying fluid pooling was noted in the right subphrenic space. Abdominal CT scan and MR imaging studies demonstrated the same lesion characteristics as the ultrasonographic findings. We diagnosed a liver abscess, then performed percutaneous US guided drainage. One month later, the features of the lesion had changed to those of a homogeneous hypoattenuating mass on CT scan. Partial hepatectomy of the posterior segment was performed because malignant disease was suspected based on the needle biopsy specimen. The excised liver specimen revealed a solid mass which was pathologically diagnosed as an inflammatory pseudotumor. We speculate that the liver abscess had developed into an inflammatory pseudotumor during the course of treatment.

Reprint requests: Hideo Matsumoto Second Department of Surgery, Okayama University School of Medicine
2-5-1 Shikata-cho, Okayama City, 700 JAPAN