

脾原発 inflammatory pseudotumor の 2 例

川崎医科大学消化器外科

川島 邦裕 小沼 英史 真嶋 敏光 岩本 末治
木元 正利 山本 康久 角田 司

脾原発 inflammatory pseudotumor の 2 例を経験したので報告する。症例 1 は 53 歳の男性で、胃癌にて遠位側胃切除術を施行後、腹部超音波検査にて脾腫瘍を指摘され入院した。腹部 CT 検査で脾内に被膜を有する低吸収値の腫瘍を認め被膜のみに造影効果を認めた。胃癌の孤立性脾転移、脾過誤腫などを疑い摘脾術を施行した。症例 2 は 40 歳の女性で、6 年前に子宮全摘の既往があり、胃粘膜下腫瘍の経過観察中に腹部超音波検査にて脾腫瘍を指摘され入院した。腹部 CT 検査で等吸収値の腫瘍を認め、MRI 検査では T1, T2 強調像とも低信号で、ガドリニウム負荷にて内部が淡く造影された。症例 1 の経験から inflammatory pseudotumor も疑い摘脾術を施行した。いずれも病理組織学的に脾原発 inflammatory pseudotumor と診断した。本例は 2 例とも開腹手術の既往があり、開腹操作が本症の発生に関与している可能性が示唆された。

はじめに

炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) は病理組織学的に炎症と間葉組織の修復に特徴づけられる腫瘍性病変で、肺、眼窩、消化管、軟部組織によくみられるが、脾臓に生じるとは比較的まれである。最近われわれは、脾原発の inflammatory pseudotumor を 2 例経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例 1: 53 歳, 男性

既往歴: 46 歳時, 胃癌にて遠位側胃切除。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: M 領域の胃癌 (IIc+IIa, H₀, P₀, t₁, n₁, sig. stage Ib) にて 3/4 遠位側胃切除術を施行後、再発の徴候なく経過していた。術後 6 年目に人間ドックの腹部超音波検査にて脾腫瘍を指摘され精査目的で入院となった。

現症: 身長 170cm, 体重 53kg。結膜に貧血, 黄疸なし。胸部異常所見なし。腹部平坦, 軟。肝脾触知せず。上腹部正中に手術創あり。表在リンパ節触知せず。

検査所見: 血液一般, 生化学検査に異常所見なく, 炎症所見もみられなかった。腫瘍マーカーは血清 CEA 1.0ng/ml, AFP 3.0ng/ml と正常であった。腹部超音波検査では、脾の腫大はなく、脾内に径 3.0cm の境界や

不明瞭な低エコー腫瘍を認めた。内部は粗造で中央部分には高エコーな部分もみられた。腹部単純 CT 検査で脾内に被膜を有する充実性の低吸収値の腫瘍を認め、造影 CT では腫瘍の被膜に一致して造影効果を認めた (Fig. 1)。脾動脈造影で脾下極血管の軽度の圧排、伸展を認めるものの、hypervascular lesion はなく、静脈相では脾門部下極に径 2.5cm の周囲が濃染される hypovasucular な腫瘍影として描出された。その他ガリウム Scintigraphy で異常集積像なく、胃癌の孤立性脾転移、過誤腫などを疑い開腹手術を行った。

手術所見: 腹腔内に胃癌の再発、転移を疑わせる所見はなかった。脾の被膜下に硬結を触知し、周囲組織への浸潤所見はなく摘脾術を施行した。

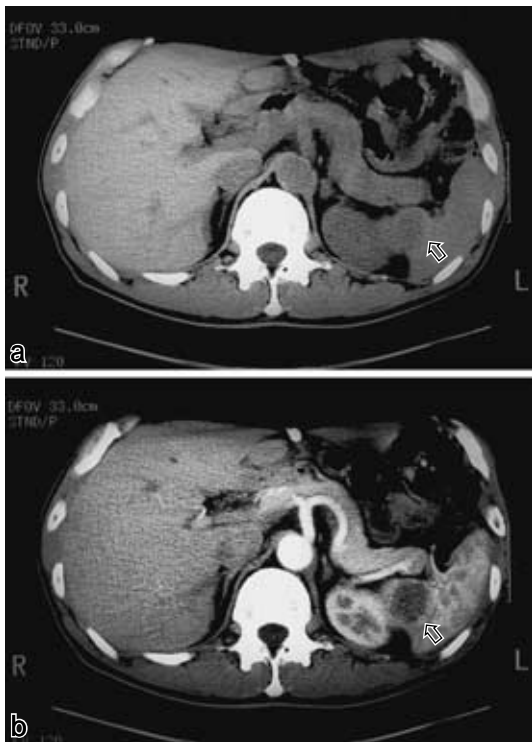
摘出標本所見: 摘出した脾臓の大きさは 11.3 × 9.0 × 4.5cm で重さ 192g, 下極に 2.5 × 2.3cm の被膜を有する弾性硬の境界明瞭な充実性腫瘍を認めた。断面は軽度膨隆し、黄白色調の星状の外観を呈していた (Fig. 2a)。組織学的には血管の増生と線維芽細胞の増殖を認め、その間にリンパ球、形質細胞などの慢性炎症細胞の浸潤がみられた。線維成分の増生がみられ、一部硝子化を伴っていた。悪性所見は認められず脾原発 inflammatory pseudotumor と診断した (Fig. 2b)。

症例 2: 40 歳, 女性

主訴: 心窩部不快感。

既往歴: 34 歳時, 卵巣膿瘍にて単純子宮全摘, 左付属器切除。

Fig. 1 (a) Abdominal plain CT scan shows a low density splenic mass. (b) Contrast enhanced CT reveals that the border of the mass is well enhanced.



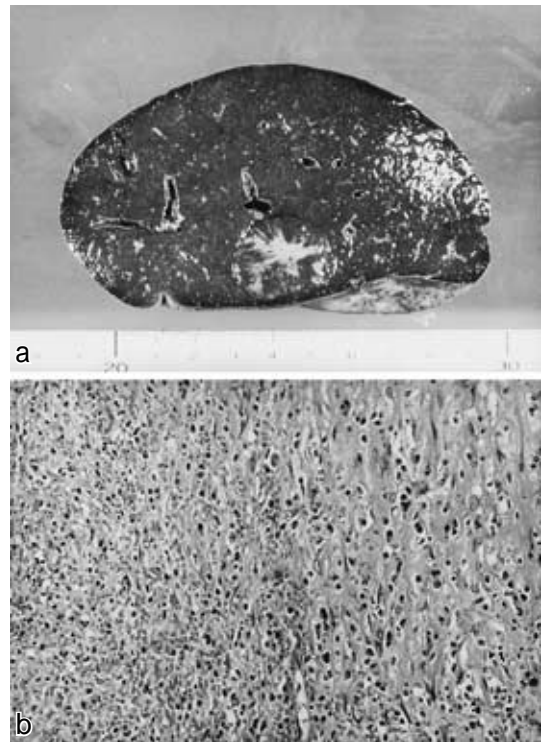
家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：心窩部不快感のため胃内視鏡検査を施行，胃粘膜下腫瘍を指摘され経過観察されていた。2年後腹部超音波検査で脾腫瘍を指摘され，当院紹介入院となった。

現症：身長151cm，体重40kg。結膜に貧血，黄疸なし。胸部異常所見なし。腹部平坦，軟。肝脾触知せず。下腹部正中に手術創あり。

検査所見：血液一般，生化学検査に異常所見なし。腫瘍マーカーは血清 CEA 3.8ng/ml，AFP 2.5ng/ml，CA19 9 10.3U/ml と上昇はなかった。腹部超音波検査では，脾門部の尾側よりに4.3×3.9cmの内部粗造な低エコーの腫瘍を認め，周囲の正常脾との境界は比較的明瞭であった。腹部CT検査で脾内に単純CTで等吸収値，造影効果のない径約5cmの表面結節状で，内部は比較的均一の充実性腫瘍を認めた。delayed CTでは周囲にわずかな造影効果を認めた。血管造影検査では，静脈相で脾下極に径5cmの周囲が淡く濃染される円形の腫瘍影が認められた(Fig. 3)。腹部MRI検査で脾

Fig. 2 (a) Cut surface of the resected spleen reveals a well-circumscribed mass covered by the splenic capsule with a central stellate area. (b) Microscopic examination reveals that the mass is composed of hyalinized connective tissue fibers associated with fibroblasts, lymphocytes and plasma cells (HE stain ×400)



内に径4×4.5cmの類円形で境界比較的明瞭な腫瘍影を認めた。内部は脾実質に比べT1，T2強調像ともに低信号で，ガドリニウム負荷後のT1強調画像で辺縁が強く，内部が淡く不均一に造影された(Fig. 4)。ガリウム Scintigraphy で肝，脾，胃などに異常集積像は認めず，症例1の経験から inflammatory pseudotumor を疑い開腹手術を行った。

手術所見：軽度の脾腫を認めたが横隔膜など周囲組織との炎症性癒着などはなく摘脾術を施行した。また，胃粘膜下腫瘍は核出した。

摘出標本所見：摘出した脾臓の大きさは9.5×6.8×4.2cmで重さ230g，脾門部下極に4.4×4.0cmの腫瘍を認めた。硬さは弾性硬で，断面では腫瘍は被膜を有する境界明瞭な充実性腫瘍で，表面は軽度膨隆し黄白色と褐色の混じた星状の外観を呈していた(Fig. 5)。組

Fig. 3 (a) Splenic angiography demonstrates no abnormal artery in the arterial phase (b) In the venous phase, hypovascular lesion with stained rim is shown at the lower pole of the spleen.

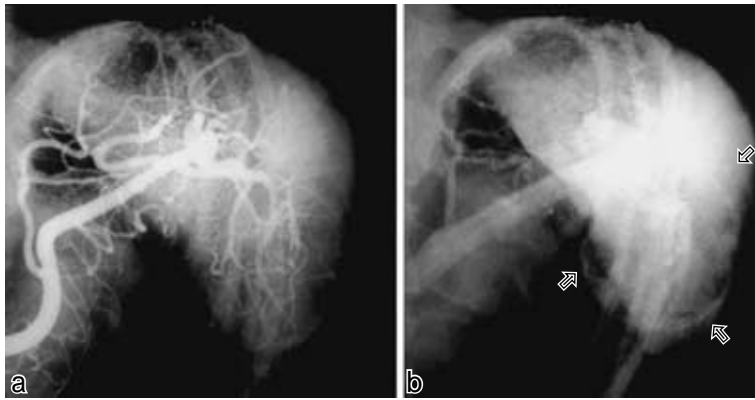
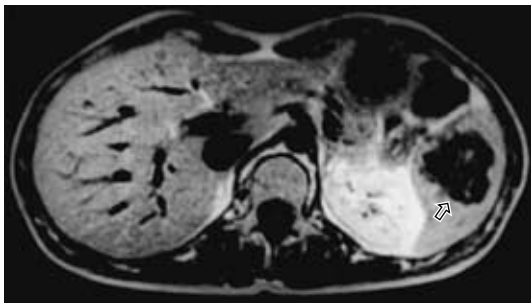


Fig. 4 On administration Ga-DTPA, T1 weighted MRI image demonstrates the mass as of lower intensity than the spleen and in the centre of mass is enhanced inhomogeneously.



織学的には症例1と同様に、血管の増生と線維成分の増生をともなう線維芽細胞の増殖および慢性炎症細胞の浸潤を認め、脾原発の inflammatory pseudotumor と診断した。

考 察

脾原発の inflammatory pseudotumor は Cotelingam ら¹⁾が1984年に報告したものが最初であり、われわれが検索しえた範囲では現在までに44例の報告がある¹⁾⁻¹²⁾。本症は臨床的には腫瘍の形態をとるが、病理組織学的には反応性炎症細胞が主体の良性疾患であり、線維芽細胞主体の間質のなかに形質細胞、リンパ球、組織球といった炎症細胞の浸潤を認めることが特徴的で、これら炎症細胞と間葉系細胞との組織反応により、多彩な形態を呈する³⁾。典型例では腫瘍は線維性

Fig. 5 Cut surface of the resected spleen reveals a well-circumscribed, lobulated, and encapsulated mass with a yellowish-white central stellate area.



被膜に包まれ、辺縁部には非乾酪壊死性肉芽腫があり、中心部に壊死と線維化が見られるとされる⁹⁾。本症の原因は現在のところ不明であるが、過剰な細胞性免疫反応、実質の出血を伴う限局性壊死、細菌やウイルス感染などが示唆されている^{13) 14)}。

自験例2例を含め脾原発 inflammatory pseudotumor の46例を検討すると、年齢は19～87歳と幅広く分布し、平均52.9歳、男性21例、女性25例で、中高年の女性に多い傾向にあった。このうち29例(63.0%)は、偶発の発見あるいは剖検例であり、症状がみられたものでは心窩部不快または腹痛が12例と最も多く、その他、

発熱，貧血，体重減少，腫瘍触知などであった．開腹手術の既往を有する症例が 8 例(17.4%)あり，他臓器の悪性腫瘍を合併していたものが 5 例みられた．

血液検査成績で，異常値の見られたものは 13 例(28.3%)のみであり，このうち白血球増多が 6 例と最も多く，その他貧血，血沈の亢進，高 γ -globulin 血症^{2,7)}，血清アミラーゼ値の上昇⁹⁾，高 Ca 血症⁶⁾がみられた．血清 CEA 値の上昇は 2 例に見られたが，併存する S 状結腸癌⁸⁾および慢性膵炎¹⁰⁾によるものと考えられた．以上より本症では若干の炎症所見を呈するものを除き，特徴的な臨床症状や検査所見といえるものはないと考えられた．自験例 2 例でも，いずれも症状はなく，他病の経過中に偶然発見されたもので，検査上も特に異常所見は見られなかった．

これまでの報告でも本症の病因を特定しえたものはないが，McHenry ら¹¹⁾は本症に類似した肉芽腫形成性病変の観点から特発性後腹膜線維症などの自己免疫異常疾患をあげ，本症との関連性を論じている．自験例では，2 例とも以前に開腹手術の既往があり，開腹操作による腹腔内あるいは後腹膜の異常な局所免疫反応が発生要因の一つである可能性も考えられた．

手術は全例摘脾術が行われており，摘出した脾の重量は 40g ~ 1,363g，平均 388.6g，腫瘍の大きさは 1.5 × 1.5 × 1.2cm ~ 11.5 × 11 × 11cm，最大径の平均は 6.6cm であった．断面の性状は中心部の壊死あるいは線維化の強い黄灰白色の部分が発見され，分葉状を呈するものが多くみられた．

画像診断所見の記載のある症例 27 例⁴⁾⁻¹²⁾での検討で，腹部超音波検査では 85% の症例が低エコーの腫瘍として観察されており，腹部 CT 検査では単純 CT で 88.2% が不均一な低吸収域として描出され，35.3% に石灰化を認めた．造影 CT では 31.2% に造影効果を認め，同じく 31.2% に腫瘍の辺縁のみの造影効果を認めた．腹部 MRI 検査では T2 強調像で内部が斑状から線状の不均一な構造を呈するものが 60% にみられ，ガドリニウム負荷後の T1 強調画像では，全例に造影効果が認められた．

一般に CT では単純で低吸収，造影では血管増生に富む結合織の部分に造影効果を認め，壊死あるいは硝子化の部分は造影不良となるといわれている^{9,12)}．特に delayed CT では線維成分が造影されるとの報告があり，自験例 2 でもこの傾向がみられた．

最近 MRI 所見が病理所見をよく反映し本症の診断に有用であるとの報告が散見され^{5,10,12)}，病理組織に

て線維成分の多い症例では T1，T2 強調像とも低信号を示し，炎症性細胞浸潤が強いものでは T2 強調像で高信号を呈するといわれる．また，ガドリニウム負荷後の T1 強調画像では肉芽部分が造影されることにより，内部構造のコントラストがより明瞭となるといわれている．自験例 2 においても辺縁が強く内部が淡く造影されたが，これも腫瘍の断面の所見をよく反映していると考えられた．

以上のように，本症は特徴的所見に乏しく，画像上も所見が一定しないため，術前診断が困難で現在まで術前に診断しえた症例はみられていない．確定診断は術後の病理組織診断によるが，本症の存在を意識し各種画像診断にて除外診断を行えば，自験例 2 のごとくある程度術前診断が可能であると考えられる．本症の治療は摘脾のみで予後は良好であり，病因の解明および診断の確立などが今後の課題であると考えられた．

文 献

- 1) Cotelingam JD, Jaffe ES : Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Am J Surg Pathol* 8 : 375-380, 1984
- 2) Fu KH, Liu HW, Leung CY : Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Histopathology* 16 : 302-304, 1989
- 3) Wiernik PH, Rader M, Becker NH et al : Inflammatory pseudotumor of spleen. *Cancer* 66 : 597-600, 1990
- 4) Iwafuchi M, Watanabe H, Maejima T et al : Inflammatory pseudotumors of the spleen report of a case with an immunohistochemical study. *Acta Pathol Jpn* 42 : 376-381, 1992
- 5) Glazer M, Lally J, Kanzer M : Inflammatory pseudotumor of the spleen : MR findings. *J Comput Assist Tomogr* 16 : 980-983, 1992
- 6) Shepherd JJ, Fassett RG, Challis D : Hypercalcaemia associated with inflammatory pseudotumor of the spleen. *Br J Surg* 79 : 50, 1992
- 7) 加藤誠也，野原正敏，船津仁之ほか：脾原発 Inflammatory pseudotumor の一例．*久留米医学会誌* 56 : 1327-1334, 1993
- 8) Natsugoe S, Ohwaki T, Tsubouti H et al : Inflammatory pseudotumor of the spleen : Report of a case. *Jpn J Surg* 23 : 246-250, 1993
- 9) Dalal BI, Greeberg H, Quinonez GE et al : Inflammatory pseudotumor of the spleen : Morphological, radiological, immunophenotypic, and ultrastructural features. *Arch Pathol Lab Med* 115 : 1062-1064, 1991
- 10) 齊藤 功，渡辺健一，高橋周作ほか：脾原発 in-

- flammatory pseudotumor の1例 . 日消外会誌
28 : 2299-2303, 1995
- 11) McHenry CR, Perzy-Gall HB, Mardini G et al : Inflammatory pseudotumor of spleen : A rare entity that may mimic hematopoietic malignancy. Am Surg 61 : 1067-1071, 1995
- 12) 富家文孝, 飯田茂晴, 加藤武晴ほか : 脾 inflammatory pseudotumor の1例 . 臨放線 42 : 1071-1074, 1997

Two Cases of Inflammatory Pseudotumor of The Spleen

Kunihiro Kawashima, Eishi Onuma, Toshimitsu Majima, Sueharu Iwamoto,
Masatoshi Kimoto, Yasuhisa Yamamoto and Tsukasa Tsunoda
Department of Gastroenterological Surgery, Kawasaki Medical School

Two cases of inflammatory pseudotumor of the spleen are reported. In the first case, a splenic mass was incidentally detected by abdominal ultrasonography in a 53 year-old man during follow up of the postoperative course of distal gastrectomy for gastric cancer. An abdominal CT scan revealed a well-encapsulated splenic mass, and only the capsule was enhanced. Solitary splenic metastasis of the gastric cancer and splenic hamartoma were considered in the differential diagnosis, and splenectomy was performed. In the second case, a 40 year-old woman who had undergone total hysterectomy six years before was also incidentally found to have a splenic mass by abdominal ultrasonography during observation of a gastric submucosal tumor. An abdominal CT scan revealed an isodensity mass in the spleen, and MRI showed a low intensity mass. The interior of the mass was slightly enhanced after Ga-DPTA administration. Based on our experience in the first case, we diagnosed the mass as an inflammatory pseudotumor of the spleen and performed splenectomy. Both tumors were histologically diagnosed as inflammatory pseudotumor of the spleen. Laparotomy had been performed previously in both cases, and this operative procedure appeared to be associated with the pathogenesis of the inflammatory pseudotumors.

Key words : inflammatory pseudotumor, splenic tumor

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 357-361, 2000]

Reprint requests : Kunihiro Kawashima Department of Surgery, Sumitomo Besshi Hospital
3-1 Ohji-cho, Niihama, 792-8543 JAPAN
