

症例報告

進行性狭窄を呈した食道の inflammatory pseudotumor の 1 例

八王子消化器病院, 東京女子医科大学第 2 病理*

鈴木 修司 林 恒男 田中 精一 今里 雅之
 武雄 康悦 梁取絵美子 木村 政人 鈴木 衛
 羽生富士夫 笠島 武*

症例は63歳の男性。吐血を主訴に近医入院。入院後、消化管造影検査にて下部食道の狭窄を指摘され、食道腫瘍を疑われ当院転院となった。消化管造影検査にて下部食道に全周性狭窄と潰瘍病変を認めた。また、内視鏡検査にて多発性食道潰瘍瘢痕と門歯列より約35cm での全周性狭窄を認めた。CT 検査でも同部位での全周性壁肥厚を認めた。通過障害が、高度となったため、食道切除を施行した。標本では潰瘍性病変と全周性壁肥厚像を認め、病理検査では線維芽細胞の増生像、反応性血管増生像、異型のない形質細胞、小型リンパ球、好酸球、多核白血球などの浸潤像より、食道の inflammatory pseudotumor(IPT)と診断された。術後経過は良好であった。食道に発生した IPT はこれまで極めてまれとされている。我々は進行性に食道狭窄を呈した IPT を経験したので若干の文献的考察を含め報告した。

はじめに

inflammatory pseudotumor(以下、IPT と略す)は、病理学的には fibroid polyp と同じで¹⁾、胃²⁾や肝³⁾などの報告例は散見されるが、食道の報告例は少ない。今回、我々は進行性狭窄を呈した食道の IPT を経験したので報告する。

症 例

症例：63歳，男性

主訴：吐血

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成10年12月6日嘔吐、吐血を主訴に近医入院となった。入院後上部消化管検査にて下部食道の狭窄を指摘され、食道腫瘍を疑われ当科へ紹介入院となった。

入院時現症：心肺に異常なかったが、若干の貧血を認めた。胸・腹部所見に異常はなかった。

入院時検査成績：Creatinine の軽度の上昇、軽度貧血を認めたが、腫瘍マーカーなどに異常は認めなかった (Table 1)。

上部消化管造影検査：平成11年1月11日当科入院後

< 2000年3月22日受理 > 別刷請求先：鈴木 修司
 〒192 0904 八王子市子安3 18 1 八王子消化器病院

Table 1 Laboratory findings

TP	7.2 g/dl	WBC	6,000 μ l
Alb	4.3 g/dl	RBC	339 $\times 10^4$ / μ l
T. Bil	0.4 mg/dl	Hb	9.7 g/dl
GOT	17 IU/L/37	Ht	29.4 %
GPT	10 IU/L/37	Plt	27.1 $\times 10^4$ / μ l
LDH	317 IU/L/37	SCC	1.9 ng/ml
ALP	242 IU/L/37	NSE	11 ng/ml
LAP	82 IU/L/37	urine protein	(-)
γ -GTP	22 IU/L/37	urine sugar	(-)
BUN	16.4 mg/dl	CRP	0.4 mg/dl
Cre	1.5 mg/dl		
AMY	480 IU/L/37		
P-AMY	128 IU/L/37		

施行し、下部食道の狭窄は進行し、潰瘍性病変を中心に腫瘍像を呈し、食道裂孔ヘルニアを認めた(Fig. 1)。

内視鏡検査：狭窄上部は食道潰瘍瘢痕を認めるのみで、ここから平滑に狭窄部に移行し、これより内視鏡の挿入は不可能であった(Fig. 2)。Barrett 食道は認めなかった。

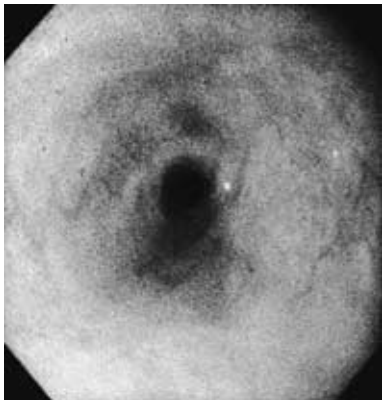
Computed tomography(CT)検査：食道下部に造影効果のある著明な食道壁の肥厚を認めた (Fig. 3)。

以上より食道潰瘍、良性食道狭窄を考え保存的加療を行っていたが、水分も嘔吐するようになり、平成11年1月26日左開胸開腹下部食道胃噴門部切除、胸腔内

Fig. 1 Upper gastrointestinal radiography revealed stenosis of the distal esophagus



Fig. 2 Endoscopic study demonstrated multiple esophageal ulcer scars and obstruction of the lumen



食道空腸吻合術 (double tract 法) を施行した。

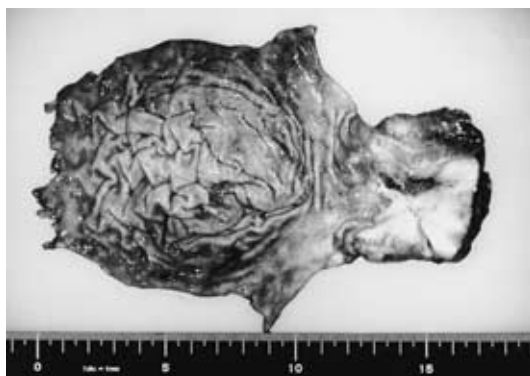
病理所見：切除標本では食道下部に潰瘍を有し，食道壁の硬化，肥厚を認めた (Fig. 4)．病理標本の HE 染色弱拡大では潰瘍性病変部右方に粘膜下層まで線維組織の増生と異型のない形質細胞，小型リンパ球，好酸球，多核白血球などの炎症細胞の浸潤を認めた (Fig. 5a)．強拡大では fibroblast の増生，膠原線維の増生，異型のない炎症細胞の浸潤像を認めた (Fig. 5b)．

免疫染色では Factor VIII (DAKO, Denmark),

Fig. 3 Enhanced computed tomography expressed wall thickening



Fig. 4 Resected specimen revealed ulceration and wall thickening



vimentin (DAKO, Denmark) とともに陽性で，間葉系組織の増生と中等度小血管の増生を認めた (Fig. 6a, 6b)．

術後経過は良好であり，術後 1 年の現在，再燃の徴候は認めていない。

考 察

食道の良性腫瘍は頻度が少なく，平滑筋腫，血管腫，脂肪腫などがあげられる．食道の IPT は Schreiber⁴ が好酸球浸潤を伴った食道胃接合部の granuloma として報告したのが最初で，我々が調べた限りこれまで 18 例の報告例を認めるのみであった (Table 2)^{3, 15)}．これらの中には inflammatory fibroid polyp として報告されているものもあるが，病理学的には差はなく³単に臨床所見として腫瘤とみえるかポリープとして見えるかの違いによる疾患名の違いとなっていると考えられた．本症例は腫瘤形成をみたため，IPT とした．

Fig. 5 a : Microscopic view revealed proliferation of fibrous tissue and admixed inflammatory cells (H. E , × 12.5)
 b : Microscopic view showed inflammatory cells admixed with reactive blood vessels and fibroblasts (H. E , × 400)

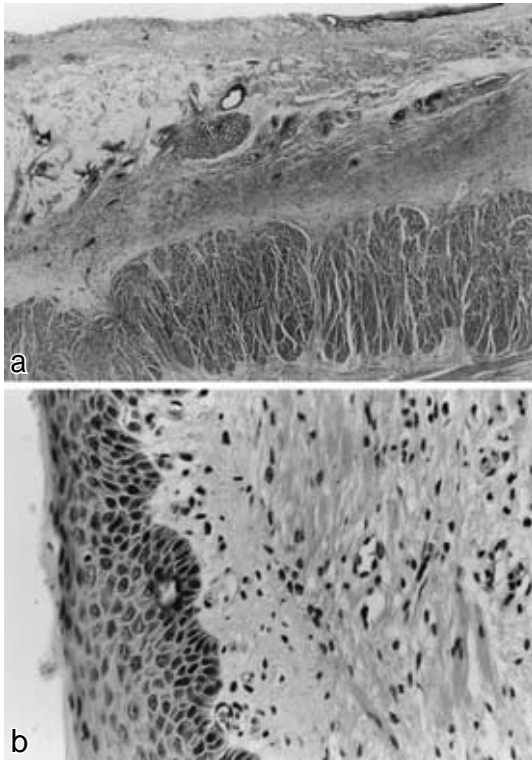
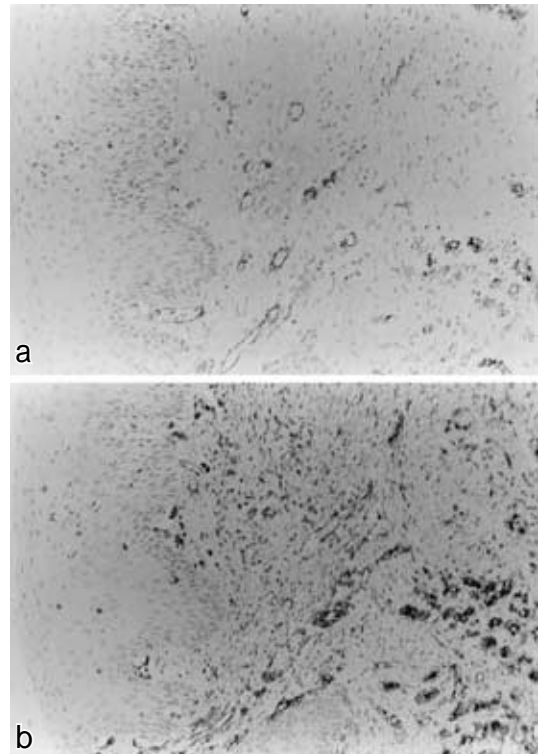


Fig. 6 a : Microscopic view of Factor VIII revealed proliferation of reactive blood vessels (× 400)
 b : Microscopic view of vimentin visualized proliferation of mesenchymal tissue (× 400)



年齢は10歳から85歳までで、平均41.2歳であった。男性14例、女性5例で男性に多い傾向を認めた。

臨床症状では嚥下障害が10例と多く、ほかに疼痛、消化管出血、嘔気、上腹部不快感などがみられた。

占居部位では食道下部から食道胃接合部に17例(89.4%)を認めた。また、胃食道逆流(gastroesophageal reflux: 以下、GER)が11例(57.9%)に認められた。また潰瘍病変は8例(42.1%)にみられたが、LiVolsiら³⁾はその関係について潰瘍の修復過程でIPTが形成されたか、IPTによる浸蝕膨張により潰瘍形成に至ったことをあげている。本症例もGER、食道潰瘍を認めているが、その関係については不明であった。発生病因には諸説あるが¹¹⁾、食道のIPTは、占居部位が食道下部から食道胃接合部に多く、逆流性食道炎や潰瘍の合併が多いことも原因の一つであると考えられた。

診断に関しては消化管X線検査、上部内視鏡検査により本症を疑われるも特徴的な所見がないため、確診には至らない。また、ポリープ病変は内視鏡下生検にて診断可能であるものもあるが、本症例のような腫瘍性病変では診断は困難であり、悪性との鑑別に苦慮することがある。

食道のIPTはまだ報告例が少なく、病理学的診断基準は明らかではないが、IPTの特徴は以下の通りである。病変は粘膜筋板、または粘膜下層に認め、粘膜下腫瘍様の発育を示し、病理組織学的特徴としてfibroblast、膠原線維などの間葉系細胞の増生を主体に異型のない好中球、形質細胞などの炎症細胞の浸潤、反応性細血管の増生が特徴で、本症例も粘膜筋板から粘膜下層にかけてHE染色や免疫染色によりこれらの所見を認めた。鑑別として逆流性食道炎による癒痕狭窄があるが、本症は逆流性食道炎のように上皮の再生増殖、角化に伴う所見を認めず鑑別は明らかである。

Table 2 Patients with inflammatory pseudotumor of the esophagus

Case	Age	Sex	Chief complaint	Location	GER	Ulcer	Author
1	23	Male	Epigastralgia	Around EGJ	(+)	(+)	Schreiber ⁴⁾
2	36	Male	Regurgitation, Dysphagia	Distal	(+)	(+)	Leand et al ⁵⁾
3	45	Female	Substernal pain, Hematemesis	Distal	(-)	(+)	LiVolsi and Perzin ¹⁾
4	67	Male	Dysphasia	Distal	(-)	(-)	LiVolsi and Perzin ¹⁾
5	65	Male	Dysphasia, Vomitting	Middle	(-)	(+)	LiVolsi and Perzin ¹⁾
6	55	Female	Dysphasia, Regurgitation	Around EGJ	(+)	(+)	LiVolsi and Perzin ¹⁾
7	62	Male	Dysphasia	Around EGJ	(+)	(-)	Staples et al ⁶⁾
8	72	Male	Dysphasia, Melena	Around EGJ	(-)	(-)	Suen and Burton ⁷⁾
9	15	Female	Upper abdominal pain	Around EGJ	(+)	(-)	Jones et al ⁸⁾
10	10	Male	Upper abdominal pain	Distal	(+)	(-)	Jones et al ⁸⁾
11	85	Male	Dizziness, Anemia	Around EGJ	(+)	(+)	Ostrovsky and Keller ⁹⁾
12	59	Male	Melena	Around EGJ	(+)	(+)	Wolf et al ¹⁰⁾
13	21	Female	Dysphasia	Distal	(-)	(-)	Wolf et al ¹⁰⁾
14	48	Female	Epigastric discomfort	Around EGJ	(-)	(-)	Ohara et al ¹¹⁾
15	40	Male	Dysphasia, Chest pain	Distal	(+)	(-)	Braver and Do ¹²⁾
16	60	Male	Hematemesis, Melena	Distal	(-)	(-)	Bosch et al ¹³⁾
17	51	Male	Dysphasia	Distal	(+)	(-)	Simmons et al ¹⁴⁾
18	57	Male	Dysphasia	Middle	(-)	(-)	Morishima et al ¹⁵⁾
19	63	Male	Hematemesis	Distal	(+)	(+)	Suzuki S et al

EGJ = Esophagogastric junction, GER = Gastroesophageal reflux

治療において外科的手術法が13例に選択され、1975年以前の6例では外科的治療により死亡例が3例認められたが、1975年以降では死亡例はなく良好な成績を示した。また、fibroid polypのようなポリープ病変に対し内視鏡的ポリペクトミーが5例になされているが、これも良好な成績であった。内科的療法は1例のみになされ⁶⁾、抗酸剤服用、体位指導、bethanecholにて症状は消失している。本症例も当科入院後これらの療法を施行したが進行性狭窄を示したため手術が必要であった。これらのことから本症の治療に関してはまず内科的治療を試み、次に難治例に対し、ポリープ病変は内視鏡的ポリペクトミーを、腫瘤を形成した病変に関しては外科的療法を選択するべきであると考えられた。

本論文の要旨は第61回日本臨床外科学会総会(東京,1999年11月)にて発表した。

文 献

- 1) LiVolsi VA, Perzin KH : Inflammatory pseudotumor (inflammatory fibrous polyps) of the esophagus. *Am J Dig Dis* 20 : 475-481, 1975
- 2) 浦岡正義, 淵上忠彦, 岩下明徳ほか : 巨大な胃の inflammatory fibroid polyp の 1 例 . *胃と腸* 23 : 95-101, 1988
- 3) 渡辺能行, 魚住元通, 川井啓一ほか : 回腸の inflammatory fibroid polyp の 1 例 . *胃と腸* 18 :

1103-1108, 1983

- 4) Schreiber MH : Granuloma of the esophagogastric junction with eosinophilic infiltration. *Gastroenterology* 43 : 206-211, 1962
- 5) Leand PM, Murray GF, Zuidema GD et al : Obstructing esophageal polyp with eosinophilic infiltration. *Am J Surg* 116 : 93-96, 1968
- 6) Staples D, Knodell R, Johnson L : Inflammatory pseudotumors of the esophagus. A complication of gastroesophageal reflux. *Gastrointest Endosc* 24 : 175-176, 1978
- 7) Suen KC, Burton JD : The spectrum of eosinophilic infiltration of the gastrointestinal tract and its relationship to other disorders of angitis and granulomatosis. *Hum Pathol* 10 : 31-43, 1979
- 8) Jones TB, Heller RM, Kirshner SG et al : Inflammatory esophagogastric polyp in children. *Am J Roentgenol* 133 : 314-316, 1979
- 9) Ostrovsky P, Keller RJ : Inflammatory esophagogastric polyp, Roentgen features. *M Sinai J Med* 48 : 137-139, 1981
- 10) Wolf BC, Khettry U, Leonardi HK et al : Benign lesions mimicking malignant tumors of the esophagus. *Hum Pathol* 19 : 148-154, 1988
- 11) Ohara M, Suwaki K, Moritani H et al : Inflammatory fibroid polyp of the esophagus removed by endoscopic polypectomy. *Gastroenterol Endosc*

- 31 : 3000 3005, 1989
- 12) Braver JM, DoNK : Inflammatory pseudotumors of the esophagus. Invest Radiol 24 : 246 247, 1989
- 13) Bosch O, Campos CG, Jurado A et al : Esophageal inflammatory fibroid tumors. Endoscopic and radiologic features. Dig Dis Sci 39 : 2561 2566, 1994
- 14) Simmons MZ, Cho KC, Houghton JM et al : Inflammatory fibroid polyp of the esophagus in an HIV-infected individual. Dysphagia 10 : 59 61, 1995
- 15) Morishima Y, Tashiro T, Nitta H et al : An inflammatory fibroid polyp of the esophagus concomitant with a superficial flat carcinoma. Int J Clin Oncol 4 : 302 306, 1999

A Case of Inflammatory Pseudotumor of the Esophagus with Progression of Stenosis

Shuji Suzuki, Tsuneo Hayashi, Seiichi Tanaka, Masayuki Imazato,
Yasuyoshi Takeo, Emiko Yanadori, Masato Kimura, Mamoru Suzuki,
Fujio Hanyu and Takeshi Kasajima*

Hachioji Digestive Disease Hospital

*Second Department of Pathology, Tokyo Women's Medical University

Inflammatory pseudotumor (IPT) of the esophagus is a very rare disease. A case of IPT of the esophagus with progression of stenosis is reported. A 63 year-old man was referred with hematemesis. Upper gastrointestinal radiography revealed stenosis of the distal esophagus in another hospital. The patient was admitted to our hospital for treatment of an esophageal tumor. Endoscopic study demonstrated multiple esophageal ulcer scars and obstruction at 35 cm from the incisors. Enhanced computed tomography confirmed wall thickening. Esophageal resection was required because of stricture development in the distal esophagus. The resected specimen revealed ulceration and wall thickening. Histopathological examination showed massive infiltration of lymphocytes, histiocytes, plasma cells and eosinophils accompanied by reactive blood vessels and fibroblasts. These findings confirmed the diagnosis of IPT.

Key words : inflammatory pseudotumor, gastroesophageal reflux, inflammatory fibroid polyp

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 1483 1487, 2000]

Reprint requests : Shuji Suzuki Hachioji Digestive Disease Hospital
3 18 1 Koyasu , Hachioji city, 192 0904 JAPAN