

MRI, T2 強調像にて放射状低信号を呈した脾炎症性偽腫瘍の 1 例

本邦報告例の臨床的検討

松江市立病院第 1 外科

吉岡 宏 倉吉 和夫 河野 菊弘
金山 博友 井上 淳

MRI, T2 強調像にて放射状の低信号を呈する炎症性偽腫瘍(IPT)の 1 例を経験したので報告する。症例は 51 歳の男性で、健診にて、US で脾に境界不明瞭で不均一な低エコーの腫瘍を指摘され入院した。愁訴はなく、末梢血検査所見では指摘すべき異常はなく、CEA や CA19-9 も正常であった。腹部 CT 検査で脾内に不均一な低吸収域を認め、遅延相で造影効果が認められた。MRI 検査では T1 強調像で不均一な低信号が認められ、ガドリニウム負荷後に遅延相で造影効果が認められた。我々の症例では、特に MRI, T2 強調像にて放射状の低信号を呈した。脾原発腫瘍の診断のもとに摘脾術を施行した。脾臓の重量は 116g で、腫瘍の大きさは、3.5 × 3.5 × 2.5cm であった。病理組織学的に IPT と診断され、MRI, T2 強調像にて放射状の低信号を呈した部位に豊富な繊維組織の増生を認めた。術前に、悪性腫瘍と IPT を鑑別するのは困難である。本邦報告例の臨床像所見を検討し報告した。

はじめに

脾炎症性偽腫瘍[inflammatory pseudotumor (IPT) of the spleen]はまれな疾患で、術前の確定診断は極めて困難である。今回、健診時に超音波検査にて脾腫瘍を指摘され、摘脾を施行された症例を経験したので本邦報告例(64 例)を中心に文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 51 歳, 男性

主訴: 特になし。

既往歴: 平成 4 年, 胆石にて胆摘。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 平成 14 年 3 月 18 日, 健診時の腹部超音波検査で脾腫瘍を指摘され、精査目的にて 4 月 8 日入院となった。

入院時現症: 身長 167cm, 体重 62.5kg, 血圧 124/78mmHg, 体温 36.5。眼瞼結膜に貧血なく、表在リンパ節を触知しなかった。胸部・腹部理学

所見にも異常は認められなかった。

入院時検査所見: 血液・生化学一般検査では異常所見は認められず、CEA, CA19-9 も正常範囲内であった。

腹部超音波検査所見: 脾に境界不明瞭で内部不均一な低エコーの腫瘍を認めた (Fig. 1)。

腹部 CT 所見: 単純 CT で low density の石灰化を伴わない腫瘍が脾内に認められ、造影 CT の遅延相では境界やや不鮮明な造影効果が認められた (Fig. 2)。

MRI 検査所見: T1 強調像にて内部不均一で低信号が認められ、特に T2 強調像にて腫瘍の中心より放射状の低信号、腫瘍の辺縁は低信号と高進号が混在し比較的分葉状を呈していた (Fig. 3)。Gd-DTPA T1 強調画像では内部不均一な造影効果を伴う腫瘍が認められた。

腹部血管造影所見: 脾動脈造影では、動脈相にて脾の腫瘍部に濃染像は認められず、静脈相で hypovascular tumor が認められた。

Ga シンチ所見では、脾に異常集積像は認められなかった。以上より、脾原発腫瘍の診断のもと摘

Fig. 1 US showed a heterogeneous hypoechoic mass with an unclear margin in the spleen.



Fig. 2 CT revealed a low density area in the spleen (upper). Contrast enhanced CT showed high density in late phase (lower).



脾術を施行した。術中所見にて腹腔内に腹水や腫大したリンパ節は認められず、脾に約4cm大の腫瘤を触知した。

摘出標本：脾臓の重量は116g、大きさ9×5×4cmで、被膜を有しない境界明瞭な弾性硬の腫瘤(3.5×3.5×2.5cm)が認められた。辺縁は暗赤色調で結節状、中心は黄白色調であった(Fig. 4)。

病理組織所見：膠原繊維の増生が主体で、増生している細胞は紡錘形から多角形で異型性は認められず中等度のリンパ球・形質細胞浸潤が認められた(Fig. 5)。

免疫組織化学的検査では、Alpha Smooth Muscle Actin(SMA), CD68(Fig. 6), Vimentin, Muscle Specific Actin(MSA)は陽性で、Desminは弱陽性、S-100, CD34は陰性だった。以上の所見よりIPTと診断された。術後、1年4か月経過したが、再発は認められていない。

考 察

悪性腫瘍のような形態の様相を呈し組織学的には炎症細胞からなる脾臓のIPTはまれな疾患で、1984年Cotelingamら¹⁾により初めて2例が報告

され、本邦では、三澤ら²⁾により1985年に初めて報告されている。Moriyamaら³⁾は海外報告例を含め報告(67例)をしている。今回インターネットにより医学中央雑誌、Medlineおよびその引用文献をもとに検索しえた範囲では、本邦では自験例を含めて64例が報告されていたので臨床像と画像所見について検討を加えた(Table 1)。

年齢は23~86歳(平均51歳)で幅広くに及び、性別(男性31例、女性30例、不明4例)に差は認められていない。臨床的には無症状の症例(48/55例)が多く、健診などで偶然発見されていた。他の炎症疾患や他臓器癌を合併していない症例の血液・生化学的検査成績では、炎症反応に乏しく、坦癌症例を除いた症例において腫瘍マーカーも全例陰性(0/19例)であった。

集計による画像診断所見をまとめてみた(Table 1)。エコー所見では、低エコー(27/39例)を

Fig. 3 MRI revealed low intensity on T1-weighted imaging (upper) radial hypodense zone on T2-weighted imaging (lower)

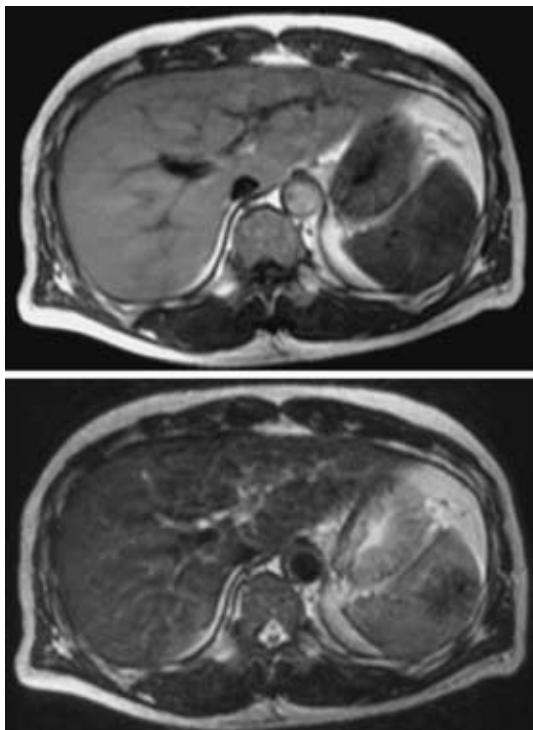
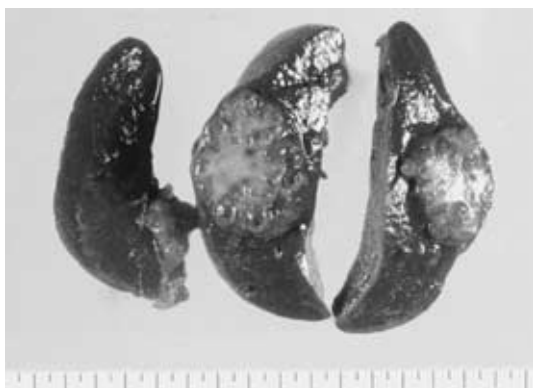
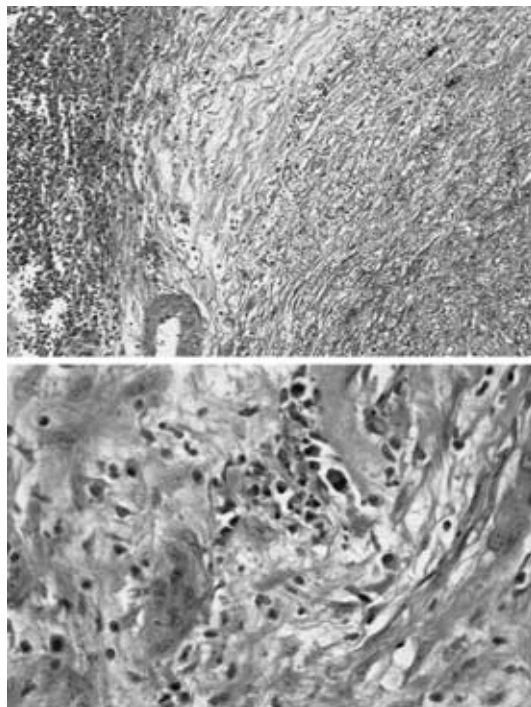


Fig. 4 The spleen weighed 116g and the hard and elastic mass measured 3.5 × 3.5 × 2.5cm. The tumor was somewhat lobulated.



しめす症例が多く、内部エコーは不均一(11/16例)な症例が多かった。脾のCT所見では、大部分

Fig. 5 The tumor was unencapsulated (HE stain, upper ; × 40). The mass is composed of hyalinized connective tissue fibers associated with fibroblast-like spindle cells, lymphocytes and plasma cells. (HE stain, lower ; × 200)

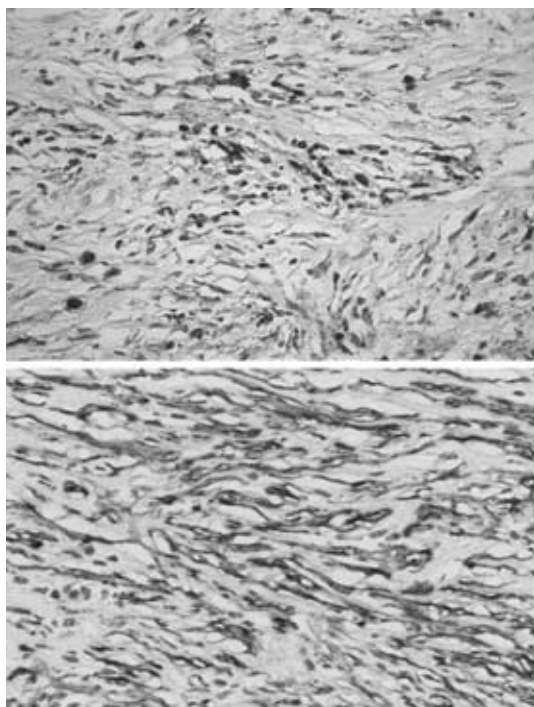


のITPは低吸収域(41/45例)として描出され、半数(8/15)に石灰化が認められた。造影効果は、多数の症例(17/28例)で陽性だった。

MRI, T1所見では、iso から low intensity(6/39例)、または low intensity(24/39例)であり、MRI, T2所見でも、iso から low intensity(32/38例)であった。Gd-DTDAによる造影効果もほとんどの症例(18/20例)で陽性であった(Table 1)。

CTおよびMRI所見を特徴として、可知ら⁴⁾は、腫瘍の辺縁は比較的分葉状で、内部は不均一な濃度や信号を示すとしている。我々の症例においてMTI, T2強調像と病理所見を対比してみるとT2強調像にて腫瘍の中心より放射状の低信号の部位は膠原線維組織の多い病巣であり、腫瘍の辺縁は低信号と高進号が混在し比較的分葉状を呈していた部位は細胞成分の多い肉芽組織の病巣と一致し

Fig. 6 Immunohistochemical stainings showed SMA positive tumor cell (upper ; $\times 200$). These tumor cells were also CD68-positive spindle cell (lower ; $\times 200$)



た．Franquet ら⁵⁾は造影 CT 所見において放射状の低濃度巣が存在すれば IPT が強く示唆されると報告している．堀江ら⁶⁾は分葉状の形態をとる腫瘍内にリング状の線状低信号がみられ，線維組織の増殖部に一致していたと報告している．症例も含め CT や MRI, T2 強調像にて線状の低濃度や低信号が認められれば IPT の可能性が高いと考える^{3,4,6)}．

動脈造影では，avascular から hypovascularity が特徴的所見 (32/34 例) であり，Ga シンチ所見では，集積ほとんど認められていない．

脾の IPT は術前には生検の困難性から，一般には術前確定診断が不可能である．しかし，悪性腫瘍を否定しえないので，一般的には，摘脾がなされている (今回の集計例では全例が摘脾例)．この中でも，経過観察例として，10 例のうち (観察期間 3 か月 ~ 7 年) 2 例のみ大きさが変わらず，他の 8 例は増大または疼痛が出現し摘脾が施行されていた．なお，肝の IPT 治療中に脾にも IPT が発生し摘脾後 MOF にて死亡した 1 例以外⁷⁾の症例では，摘脾後の予後は良好であった．

最近，腹腔鏡下摘脾術を施行した 4 症例の報告

Table 1 Collection of 64 cases of inflammatory pseudotumor of the spleen in Japan

Age (years)	54.7 (23 ~ 86)	MRI, T1	
Gender (male/female)	31/30	low intensity	24/39
Constitutional symptoms		low to iso intensity	6/39
upper abdominal pain	5/55	hyperintensity	3/39
discomfort	3/55	Gd-DTPA enhanced	18/20
Laboratory findings		MRI, T2	
anemia	3/31	low intensity	16/38
leukocytosis	1/41	iso intensity	16/38
elevation of tumor marker	0/19	hyperintensity	3/38
US		mixed (low and hyper)	3/38
hypochoic	27/39	Angiography	
hyperechoic	3/39	avascular ~ hypovascular	32/34
mixed (hypo and hyper)	9/39	hypervascular	2/34
homogeneous	5/16	Ga scintigram (accumulated)	2/21
heterogeneous	11/16	Tumor size	5.5cm (2 ~ 12)
well-circumscribed	11/15	Splenic weight	235g (130 ~ 656)
CT		a solitary mass	64/64
low density	41/45	elastically hard ~ hard	23/23
iso density	3/45	encapsulated	23/31
high density	1/45	Splenectomy (Laparoscopic)	50/50 (4)
enhanced	17/28	EBV was detected	2/4
with calcification	8/15		

をみるが、術前確定診断が困難であることや、悪性腫瘍に対する鏡視下手術で、port site metastasisの問題もあり⁸⁾、術前に悪性が良性かの確定診断が確立していない状況下において術式選択には慎重な対処が必要と考える。

本邦報告例の切除標本では、脾重量は130～656g(平均253.4±140.3g)、腫瘍の最大径は2～12cm(平均5.5±2.5cm)で、すべての症例で単発である。硬度は弾性硬から堅で、境界明瞭、被膜は半数以上で認められていた。

Somerenら⁹⁾はIPTを1) Xanthogranulomas type, 2) Plasma cell granulomas, 3) sclerosing pseudotumorの3型に分類している。我々の症例はsclerosisを主体としplasma cell granulomasと混合していた。

IPTの病因は、cytokineの関与、感染、限局性の壊死、ウイルス感染、免疫反応、出血、特異な細胞性免疫反応、循環器障害¹⁾、インターロイキン¹⁰⁾などの他、Epstein-Barr virus (EBV)の関与も指摘されてきている。Arberら¹¹⁾はIPTの症例に対しEBV ribonucleic acidを標識するin site hybridizationを行い、脾のIPT症例6例中4例(66.7%)が陽性を示したことよりEBV感染がIPTの腫瘍性増殖に関与している可能性を示唆し、Coffinら¹²⁾も同様にEBV感染の関与を示唆している。自験例も含めた本邦報告例では4例中2例はEBVが陽性であった¹³⁾⁻¹⁵⁾。Arberら¹¹⁾は、脾臓と肝臓のIPTの40～60%の症例にEBV陽性の多数のspindle cellを認め、EBV陽性spindle cellはmyofibroblastまたはfollicular dendritic cellだったと報告している。Yamaguchiら¹³⁾の症例でもEBV陽性spindle cellはCD68-positive macrophageであり、IPTは緩徐に増大する特徴をもち、EBV感染によりautonomous growthやmalignant potentialをもつと報告している。現在ではIPTを真の腫瘍と考え、Inflammatory myofibroblastic tumor(IMT)と診断されることが多く、良悪性境界病変または低悪性腫瘍とみなされている¹²⁾。本来は炎症性疾患である以上、経過観察が可能であれば腫瘍は縮小し手術は必要ないという報告もあるが¹⁶⁾、脾のIPTに関しては縮小例の報

告はなく増大例がほとんどで、現在の段階では手術適応と考える。

文 献

- 1) Cotelingam JD, Jaffe ES : Inflammatory pseudotumor of the spleen. *Am J Surg Pathol* 8 : 375-380, 1984
- 2) 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
- 3) Moriyama S, Inayoshi A, Kurano R : Inflammatory pseudotumor of the spleen : Report of a case. *Surg Today* 30 : 942-946, 2000
- 4) 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
- 5) Franquet T, Montes M, Aizicorbe M et al : Inflammatory pseudotumor of the spleen : ultrasound and computed tomographic findings. *Gastrointest Radiol* 14 : 181-183, 1989
- 6) 堀江靖雄, 平方良輔, 寺坂禮治ほか : 脾のinflammatory pseudotumorの1例. *画像診断* 14 : 946-950, 1994
- 7) 枝長充隆, 荒川稔二, 表 哲夫ほか : 肝・脾に発生したInflammatory pseudotumorの一症例. *日救急医学会誌* 9 : 471, 1998
- 8) Neuhaus SJ, Texler M, Hewett PJ et al : Port site metastasis following laparoscopic surgery. *Br J Surg* 85 : 735-741, 1998
- 9) Someren A : Inflammatory pseudotumor of liver occlusive phlebitis. Report of a case in a child and review of the literature. *Am J Clin Pathol* 69 : 176-181, 1978
- 10) Perron T, Wolf-Peters CD, Frizzera G : Inflammatory pseudotumor of lymph nodes. *Am J Surg Pathol* 12 : 351-361, 1988
- 11) Arber DA, Kamel OW, Rijn M et al : Frequent presence of the Epstein-Barr virus in inflammatory pseudotumor. *Hum Pathol* 26 : 1093-1098, 1995
- 12) Coffin CM, Humphrey PA, Dehner LP et al : Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor : A clinical and pathological survey. *Semin Diagn Pathol* 15 : 85-101, 1998
- 13) Yamaguchi M, Yamamoto T, Tate G : Specific detection of Epstein-Barr virus in inflammatory pseudotumor of the spleen in a patient with a high serum level of soluble IL-2 receptor. *J Gastroenterol* 35 : 563-566, 2000
- 14) 八十嶋仁, 櫻井一成, 名方保夫ほか : 脾臓のinflammatory pseudotumorの捺印細胞診断並びに文献検討. *癌の臨* 46 : 972-977, 2000

15) 木村聖子, 稲葉将陽, 河野尚美ほか: 脾臓の肉芽腫瘍形成を伴った脾 inflammatory pseudotumor の 1 例. 神奈川医会誌 24 : 153 154, 1997

16) 今津浩喜, 船曳孝彦, 落合正宏ほか: 脾原発 inflammatory pseudotumor の一例. 日臨外会誌 59 : 2895 2901, 1998

A Case of Splenic Inflammatory Pseudotumor with Radial Hypodense Zone on T2-weighted MRI in the Spleen
Review of the Japanese Literature

Hiroshi Yoshioka, Kazuo Kurayoshi, Kikuhiko Kouno, Hiroto Kanayama and Jun Inoue
First Department of Surgery, Matsue City Hospital

We report a case of inflammatory pseudotumor (IPT) with radial hypodense zone on T2-weighted MRI in the spleen. A 51-year-old man admitted for medical examination of a heterogenous hypoechoic tumor with an unclear margin in the spleen found by abdominal echography had no complaints and his blood date was all within normal limits. CEA and CA19-9 were within normal ranges. CT showed heterogeneous hypointense area with delayed contrast enhancement. On T1-weighted MRI, the tumor showed heterogeneous hypointensity. After administration of Gd-DTPA, the delayed phased image showed tumor enhancement. Especially, T2-weighted MRI showed radial hypodense zone in our case. We conducted splenectomy under a diagnosis of primary splenic tumor. The spleen weighed 116 g and the mass measured 3.5 × 3.5 × 2.5 cm. Histopathologically, the tumor was diagnosed as splenic IPT. The radial hypodense zone on the T2-weighted MRI corresponded to a large amount of fibrous tissue. Preoperatively it is important but difficult to distinguish a benign splenic IPT from malignant tumors. We review 64 cases including ours in the Japanese literature clinically and radiographically

Key words : inflammatory pseudotumor, spleen

[Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 187 192, 2004]

Reprint requests : Hiroshi Yoshioka First Department of Surgery, Matsue City Hospital
101 Nadamachi, Matsue, 690 8509 JAPAN
