

症例報告

虫垂に発生した炎症性偽腫瘍の1例

独立行政法人国立病院機構熊本南病院外科, 同 麻酔科¹⁾, 熊本市医師会検査センター病理部²⁾,
たのうえ胃腸科クリニック³⁾

赤木 純児 高橋 教朗 岡崎 伸治 高井 英二
竹本 隆博 柳下 芳寛¹⁾ 蔵野 良一²⁾ 田上 洋一³⁾

虫垂に発生した炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor; 以下, IPT) を経験したので報告する。症例は76歳の男性で, 2005年1月中旬より右下腹部痛が出現した。大腸内視鏡検査を受け盲腸部に径30mmの隆起性病変を認め, 炎症所見 (WBC 13,320/ μ l, CRP 12.6mg/dl) も認めた。大腸内視鏡検査の生検の結果はGroup Iであったが悪性腫瘍も否定できないため, 2005年2月上旬回盲部切除術を施行した。虫垂には蜂窩織炎を認め, 盲腸部の隆起性病変は虫垂開口部から虫垂内部まで連続して存在していた。強度の線維性結合織の増生を認め腺上皮に腫瘍性増殖は認めないことから, 虫垂炎を契機に発症したIPTと診断した。大腸のIPTは極めてまれであり, これまでの報告例は自験例を含めて23例 (虫垂発症例6例) であった。今回, IPTが虫垂開口部を閉塞するように増殖したため虫垂炎が増悪したことが考えられ, IPTは早期の治療が望ましいことが示唆された。

はじめに

我々は右下腹部痛で発見された虫垂の炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor; 以下, IPT) を経験した。IPTは大腸, 特に虫垂に発症することはまれであるとされている。若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例: 76歳, 男性

主訴: 右下腹部痛

既往歴: 高血圧で60歳より内服治療。

現病歴: 数週間前より右下腹部に違和感を感じていたが, 2005年1月中旬ころより右下腹部痛が出現した。近医での診察で, Mcberney点の圧痛が認められ, 血液検査で白血球増多 (13,300/ μ l), 腹部超音波検査で虫垂は認められず盲腸の腸管壁肥厚が認められた。このため, 翌日近医で大腸内視鏡検査を施行し, 盲腸部の虫垂開口部に一致して径30mmの隆起性病変を認めた。また, 白血球増

多 (11,400/ μ l) と右下腹部痛も持続していたため, 精査加療目的で1月下旬当院紹介入院となった。

入院時現症: 身長165cm, 体重56kg。眼瞼結膜に貧血・黄疸を認めなかった。

入院時理学検査所見: 右下腹部, 特にMcberney点に圧痛を認めた。その他の急性虫垂炎に特有の所見は認めなかった。また, 同部位に腫瘤は触知しなかった。

入院時検査所見: WBC 13,320/ μ l, CRP 12.6 mg/dl と強い炎症所見を認めた。

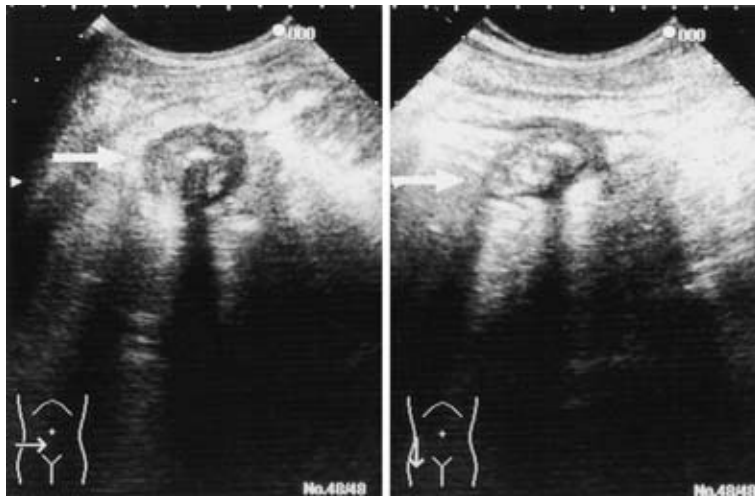
腹部超音波検査所見: 回盲部に辺縁平滑で, 内部エコーが不均一な hypoechoic lesion を認めた (Fig. 1)。内部には acoustic shadow を伴う strong echoic lesion を認め, 石灰化と考えられた。

腹部CT所見: 盲腸部に壁肥厚と腫瘤状病変を認めた (Fig. 2)。腫瘤状病変は石灰化を伴っていた。盲腸の周囲脂肪織の濃度上昇を認めた。

大腸内視鏡検査所見: 盲腸部の虫垂開口部に一致して, 径約30mmの隆起性病変を認めた。表面は発赤調で結節状であったが, 大腸粘膜のピット構造が認められた (Fig. 3)。生検の結果は間質に

<2006年4月26日受理>別刷請求先: 赤木 純児
〒869-0593 宇城市松橋町豊福 2338 独立行政法人
国立病院機構熊本南病院外科

Fig. 1 Abdominal ultrasound examination showed about 2cm low echoic mass lesion with calcification inside (arrow).



強い単核球主体の炎症細胞浸潤を認めるが、腺上皮に異型はなく腫瘍性増殖像も認められなかった。

入院後経過：入院後、抗生剤の点滴にて入院後4日目には炎症所見も著明に改善し（WBC 5,920/ μ /, CRP 3.1mg/dl), 右下腹部痛もほぼ消失した。しかし、入院後8日目に施行した大腸内視鏡検査では、盲腸部の隆起性病変には著変は認められなかった。このため、家族・患者本人に下記のようなインフォームドコンセントを行った。これまでの経過や画像検査では、盲腸部の腫瘍は炎症性の腫瘍が最も考えられるが、悪性病変（癌や悪性リンパ腫など）も完全には否定できないため切除して確定診断をつけたほうがよい。しかし、内視鏡的切除は手技的に困難であり、手術による切除が必要であろうと説明した。同意が得られたので、2005年2月上旬回盲部切除術を施行した。

手術所見：虫垂の根部、回腸末端部より約100cm口側の回腸、S状結腸の一部が一塊となって、右側腹部に炎症性に強固に癒着していた。盲腸部と虫垂は後腹膜に炎症性に強く癒着していた。虫垂は全体に著しく腫脹し暗赤色で壁全層にわたって壊死に陥っているように見えた。また、後腹膜と癒着している部分は後腹膜へ穿通していると考えられた。虫垂から虫垂根部付近の盲腸部にかけ

て炎症の程度がもっとも強く、さらに盲腸部全体と回腸末端部付近にも炎症は波及していた。このため、炎症の波及のない上行結腸の口側部と回腸末端部より約10cm口側部で切離し、100mmのリニアカッターを2本使用してfunctional end to end anastomosisを施行した。また、悪性腫瘍を示唆するリンパ節転移は認められなかった。これらの所見は虫垂の炎症とその周囲組織への炎症の波及をもっとも示唆していた。しかし、術中虫垂根部付近に硬結を触知し、術前の大腸内視鏡検査や腹部CTの所見から粘膜下腫瘍や悪性腫瘍の可能性も完全には否定できなかったため、D1郭清を伴う回盲部切除術を施行した。

切除標本肉眼検査所見：虫垂孔に一致して約20mmの隆起性病変を認め、表面は結節状であった。虫垂は約5.0cmほどで全体的に暗赤色に腫大し、盲腸壁に炎症性に癒着していた（Fig. 4A）。虫垂内腔は膿性、出血性で、虫垂間膜も炎症性に腫大・発赤していた。隆起性病変の中央部での剖面では、盲腸部の隆起性病変は虫垂内部まで連続していた（Fig. 4B）。

病理組織学的検査所見：虫垂開口部から虫垂体部までの粘膜固有層～漿膜下層に強い好酸球浸潤を認め、炎症は周囲脂肪織に及んでいた（Fig. 5A, 蜂窩織炎の所見）。隆起性病変部は強度の線維性結

Fig. 2 A: Abdominal CT scan showed wall thickening of the cecum (arrow head) and tumor lesion in the cecum (arrow). B: Calcification was detected in the tumor lesion (arrow) and CT density of the adipose tissue around cecum was higher than normal (arrow head).

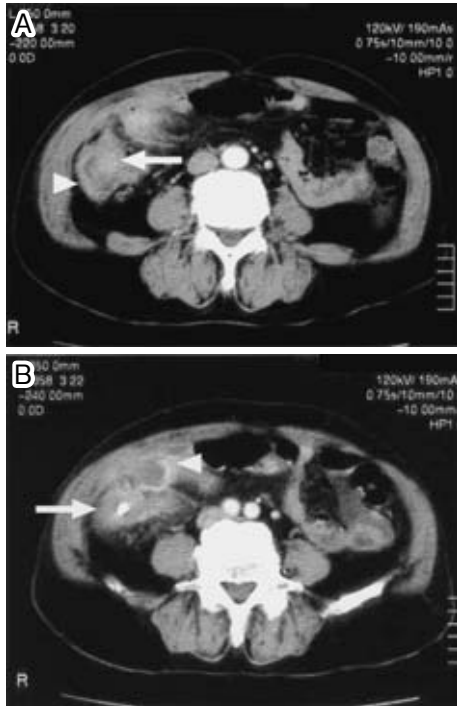
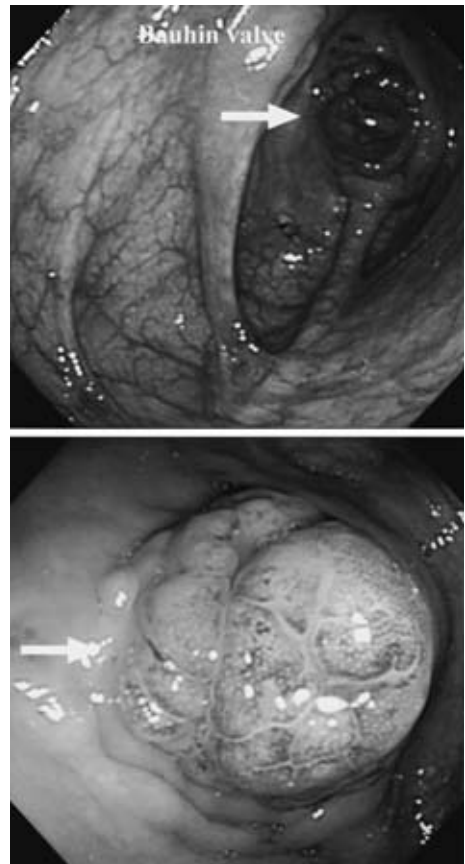


Fig. 3 Colonoscopy showed the elevated lesion (arrow) at the entrance of appendix.



合織の増生を認めたが、腺上皮には異型はなく腫瘍性増殖は認められなかった(Fig. 5B)。蜂窩織炎性虫垂炎を契機として発生した偽腫瘍性病変が最も考えられた。

術後経過：術後経過は順調で、術後2日目には排便・排ガスが認められた。術後4日目にはドレーン抜きし術後6日目より流動食を開始した。術後20日目に退院した。

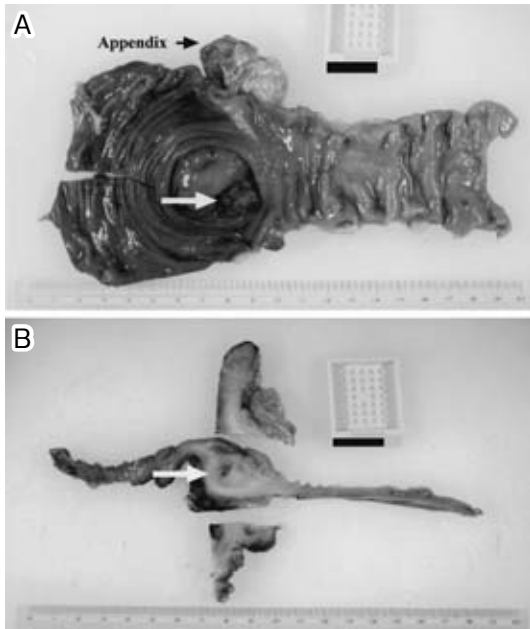
考 察

IPTは以前より plasma cell granuloma, xanthogranuloma, mast cell granuloma などと呼ばれていたものであるが、組織学的には形質細胞、リンパ球、組織球などの炎症細胞浸潤を伴った限局性肉芽腫性病変である。Umikerら¹⁾はこれらがあたかも悪性腫瘍の様相を呈することより inflammatory pseudotumor と総称した。肺や肝

臓・脾臓などの実質臓器で多く報告されている。消化管では1920年 Konjetzny²⁾が胃の好酸球浸潤を伴う粘膜下腫瘍に対して、polypoid fibromaとして報告したのが初めてである。1949年 Vanek³⁾は胃の好酸球浸潤性病変のうち限局性隆起を示す病変を、gastric submucosal granuloma with eosinophilic infiltrationとして記載し、1953年に Helwigら⁴⁾は好酸球浸潤のみにとらわれず炎症性の反応性増殖の結果としてポリプ・隆起型を呈するものを inflammatory fibroid polyp (IFP)と称した。その後、Burkhartら⁵⁾は胃の polypoid 以外の病変も含めて IPTとして報告した。消化管の IPTが実質臓器での IPTと本態が同じかどうかは多少疑問の残るところである。

消化管の IPTの病理組織学的特徴は、①線維芽

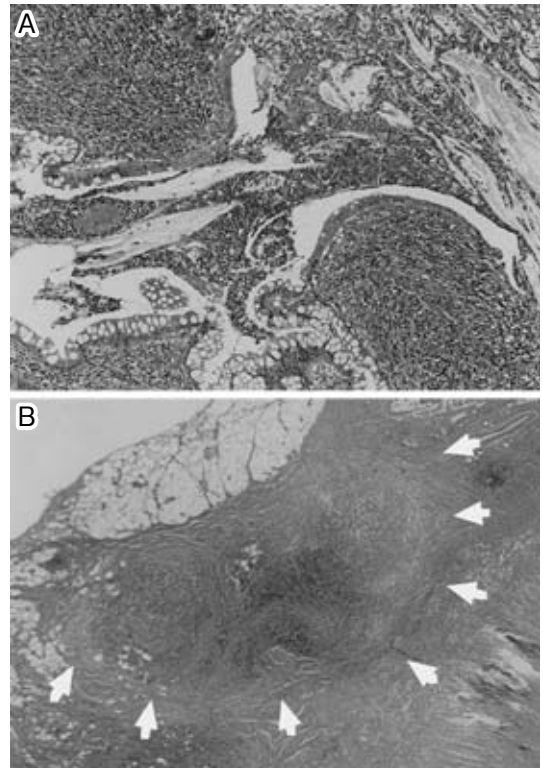
Fig. 4 A : Macroscopic appearance of resected cecum and ileum end. Elevated tumor measuring 20mm was detected at the site of the entrance of appendix (arrow). B : Elevated tumor was extending from the cecum to appendix (arrow).



細胞・疎性膠原線維の増生, ②好酸球およびリンパ球の浸潤, ③細小血管・リンパ管増生などである。すなわち, IPT は好酸球やリンパ球などの浸潤を伴う幼弱な肉芽腫の形成を特徴としている。しかしながら, IPT が一般の修復過程にみられる肉芽⁶⁾と異なるのは, 縮小・癒着化せず成長し続け消化管の内腔に突出するポリープ状の腫瘤を形成することが多いことである^{7,8)}。内視鏡的所見としては, 線維性結合織の増生が粘膜内を主体としているものでは半球状ないしポリープ状となり, 粘膜下層を主体とするものでは粘膜下腫瘍様となる⁹⁾。さらに, 腫瘍が大きくなると, 腫瘍表面に潰瘍を伴って隆起の頂部に深い陥凹を示す型の他に, 隆起上部の粘膜が広く欠損して陰茎亀頭様外観を示す型が見られるようになる⁷⁾。陰茎亀頭様の所見は IPT の特徴とされており⁷⁾, 術前診断に有用であったとする報告もある¹⁰⁾。

消化管 IPT は胃, 回腸に比較的多く, 大腸には比較的まれである。我々が(医学中央雑誌(1953~

Fig. 5 A : Microscopic findings of the resected specimen showed a phlegmonous appendicitis. B : Fibronous connective tissues (arrow head) were strongly grown at the elevated lesion (A : HE stain $\times 20$, B : HE stain $\times 40$).



2005年)で「炎症性偽腫瘍」をキーワードとし, また MEDLINE (1950~2005年)で「inflammatory pseudotumor (IPT)」をキーワードとした検索しえたかぎりでは, 大腸 IPT は自験例を含めて 23例であった^{11)~32)}(Table 1)。このうち虫垂発症例は自験例をいれて 6例 (6/23 26%) であり, 盲腸部 (8/23 35%), 横行結腸 (5/23 22%) に比べても少ないほうではなかった。腫瘍径は 1cm 以下のものから最大 8cm のものまでみられ, 平均は 4.5cm であった。年齢は成人に限った場合, 20~81歳 (平均 50歳) で, 女性 13例, 男性 10例であった。形態は steel を有するものが 10例, その他 steel を有さないものが 13例で, 両者間の差異は認められなかった。1.5cm までの小さなものはポリペクトミーが行われているが, 2cm 以上

Table 1 Case reports of inflammatory pseudotumor in colon and rectum in Japan

	Author	Year	Age/Sex	Location *	Shape	Size (cm)	Treatment
1	Nishihara ¹¹⁾	1978	41/F	Ce	steel (+)	6.0×3.5×3.5	Ileo-cecal resection
2	Matsuzaki ¹²⁾	1979	69/F	T	steel (+)	5.0×2.5	Colectomy
3	Takemori ¹³⁾	1980	52/F	T	steel (+)	2.4×1.6×1.5	Colectomy
4	Sugimura ¹⁴⁾	1981	1/F	D	steel (-)	3.5×2.7×1.2	Colectomy
5	Suzuki ¹⁵⁾	1983	20/M	T	steel (+)	4.5×3.5×2.5	ND **
6	Hashimoto ¹⁶⁾	1983	46/F	Ce	steel (+)	8.0	Ileo-cecal resection
7	Shimizu ¹⁷⁾	1984	32/M	Ce	steel (+)	3.5×2.5×2.5	Right hemicolectomy
8	Fukuda ¹⁸⁾	1985	48/M	Ce	steel (+)	3.0	ND **
9	Sasaki ¹⁹⁾	1989	65/M	Ap	tumor	3.0×2.5	Right hemicolectomy
10	Miyagawa ²⁰⁾	1990	7/F	Ce	steel (+)	5.2×4.7×3.4	Colectomy
11	Yamagiwa ²¹⁾	1990	41/F	Ap	tumor	3.0×3.0	Appendectomy
12	Imatsu ²²⁾	1993	43/M	S	sausage-like	3.0×2.0	Sigmoidectomy
13	Taguchi ²³⁾	1993	32/F	S	steel (+)	4.0×3.6×3.4	Sigmoidectomy
14	Yamamoto ²⁴⁾	1993	28/M	R	steel (-)	1.5	Polypectomy
15	Iwasaki ²⁵⁾	1994	66/F	R	steel (+)	5.0×2.0×2.0	Right hemicolectomy
16	Yoshikawa ²⁶⁾	1994	81/F	Ce	steel (-)	0.8×0.4×0.4	Polypectomy
17	Horie ²⁷⁾	1995	51/M	Ap	tumor	5.0×2.0	Sigmoidectomy
18	Ozeki ²⁸⁾	1996	43/M	Ap	tumor	7.0×6.0×6.0	Ileo-cecal resection
19	Ohno ²⁹⁾	1998	71/F	T	steel (-)	7.2×5.4×5.4	Colectomy
20	Nakase ³⁰⁾	2000	45/F	Ce	steel (-)	0.5×0.4×0.5	Polypectomy
21	Nagata ³¹⁾	2001	77/F	Ap	tumor	2.5×2.5	Ileo-cecal resection
22	Kawashima ³²⁾	2001	79/M	Ce	tumor	5.0×3.0×3.0	Ileo-cecal resection
23	Our case		76/M	Ap	tumor	2.0×2.0	Ileo-cecal resection

* Ce : Cecum, T : Transverse colon, D : Descending colon, Ap : Appendix, S : Sigma, R : Rectum ** ND : not described

のものに関しては虫垂切除や結腸部分切除などの小範囲手術から半結腸切除までの幅広い術式が選択されている。術前にIPTの診断が確定すれば、ポリペクトミーや局所切除で十分と考えられ、腹腔鏡下手術の適応にも入ってくるのではないかと考えられる。IPTの悪性化の報告はないが、臨床的には他の粘膜下腫瘍や悪性腫瘍との鑑別が困難なことが多い。自験例でも生検で悪性腫瘍は認められなかったが、隆起の表面がピット構造を有する大腸粘膜に覆われていたため粘膜下に腫瘍性病変が隠れている可能性を完全に否定することができなかった。また、サイズが大きくなれば、腸重積²²⁾²⁵⁾、大量出血¹⁸⁾など起こすことが報告されている。自験例でも数週間持続した虫垂の炎症によってIPTが発症し、さらにこのIPTが虫垂開口部を閉塞するような形態で発育したため、虫垂炎が増悪したものと推定した。

今回、我々は虫垂に発生したIPTを経験した。IPTは、①粘膜下腫瘍・悪性腫瘍との鑑別が困難

であること、②サイズの増大による種々の合併症(腸重積、出血、自験例では炎症の増悪)を併発してくること、これらの二つの理由で発見したら放置せずに適切な切除術を施行することが望ましいと考える。

文 献

- 1) Umiker WO : Postinflammatory tumors of the lung : report of four cases simulating xanthoma, fibroma or plasma cell tumor. *J Thorac Surg* **28** : 55, 1954
- 2) Konjetzny GE : Uber Magenfibrome. *Klin Chir* **119** : 53—61, 1920
- 3) Vanek J : Gastric submucosal granuloma with eosinophilic infiltration. *Am J Pathol* **25** : 397—441, 1949
- 4) Helwig EB, Rander A : Inflammatory fibroid polyp of the stomach. *Surg Gynecol Obstet* **96** : 355—367, 1953
- 5) Burkhart CR, Wilkinson H : Inflammatory pseudotumor of the stomach. *Cancer* **18** : 1310—1316, 1965
- 6) Kischer CW : Fine structure of granulation tissue from deep injury. *J Invest Dermatol* **72** :

- 147—152, 1984
- 7) 浦岡正義, 淵上忠彦, 岩下明德ほか: 巨大な胃の inflammatory fibroid polyp の1例. 胃と腸 **23**: 95—101, 1988
 - 8) 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
 - 9) 南部 匠: 胃の Inflammatory Fibroid Polyp—特にその初期病変について. 福岡医誌 **70**: 721—731, 1979
 - 10) 成宮徳親: 大量の下血をきたした胃好酸球形肉芽腫の1例. Prog Dig Endosc **16**: 194—197, 1980
 - 11) 西原幸一, 水島陸枝, 伊藤慈秀ほか: 盲腸の Inflammatory fibroid polyp [Helwig] の1例. 癌の臨 **24**: 1311—1316, 1978
 - 12) 松崎松平, 菊池一博, 岩村健一郎ほか: 大腸に発生した Eosinophilic Granuloma (Inflammatory Fibroid Polyp) の一例. 日消誌 **76**: 126—132, 1979
 - 13) 竹森弘光, 相沢 中, 菅原 耕ほか: Recklinghausen 病に併発した大腸好酸球形肉芽腫 (Inflammatory Fibroid Polyp) の1例. 日本大腸肛門病会誌 **33**: 217—221, 1980
 - 14) 杉村公平, 橋本 俊, 加藤文彦ほか: 大腸の Inflammatory fibroid polyp の一例. 日本大腸肛門病会誌 **34**: 26—30, 1981
 - 15) 鈴木秀和, 柳谷重利, 福士勝久ほか: 横行結腸に発生した Inflammatory fibroid polyp の1例. Gastroenterol Endosc **25**: 1111, 1983
 - 16) 橋本大定, 佐藤健吾, 宇野武治ほか: 盲腸に発生した Inflammatory fibroid polyp の1例. 日消誌 **80**: 2316—2317, 1983
 - 17) 清水誠治, 多田正大, 山本 実ほか: 盲腸の Inflammatory Fibroid Polyp の1例. Gastroenterol Endosc **6**: 900—904, 1984
 - 18) 福田康二, 南八多美, 生田篤也ほか: 大量出血を示した大腸 Inflammatory fibroid polyp の1例. Gastroenterol Endosc **27**: 588—589, 1985
 - 19) 佐々木正寿, 花立史香, 山村浩然ほか: 虫垂原発の inflammatory pseudotumor の1例. 消外 **12**: 519—522, 1989
 - 20) 宮川智幸, 西村 洋, 小泉 勉ほか: 大腸 Inflammatory Fibroid Polyp の免疫組織化学的および電顕的検討. 埼玉小児医療センター医誌 **6**: 132—135, 1990
 - 21) 山際裕史, 寺田紀彦, 橋本 修ほか: 虫垂の inflammatory pseudotumor の1例. 癌の臨 **36**: 1059—1062, 1990
 - 22) 今津浩喜, 笠原正男, 黒田 誠ほか: inflammatory fibroid polyp (IFP) の2例. 日臨外医会誌 **54**: 455—460, 1993
 - 23) 田口久雄, 高原 聡, 楠本征夫ほか: S状結腸 Inflammatory Fibroid Polyp の1例. Gastroenterol Endosc **35**: 335—341, 1993
 - 24) 山本雅由, 杉田 昭, 石原伸一ほか: 直腸の炎症性線維性ポリープ Inflammatory Fibroid Polyp の1例. 日本大腸肛門病会誌 **46**: 778—782, 1993
 - 25) 岩崎 茂, 水口滋之, 大和田進ほか: 盲腸の inflammatory fibroid polyp による成人腸重積症の1例. 日臨外医会誌 **55**: 2616—2620, 1994
 - 26) Yoshikawa I, Murata I, Abe S et al: Plasma cell granuloma of the colon: a report of a case removed by endoscopic polypectomy. Am J Gastroenterol **89**: 1249—1252, 1994
 - 27) 堀江良彰, 金丸 洋, 多田真和ほか: 虫垂黄色肉芽腫の1例. 日本大腸肛門病会誌 **48**: 509—514, 1995
 - 28) 小関啓太, 八重樫寛治, 大野 玲ほか: 虫垂の炎症性偽腫瘍の1例. 日本大腸肛門病会誌 **51**: 30—34, 1998
 - 29) Ohno M, Nakamura T, Ohbayashi C et al: Colonic obstruction induced by plasma cell granuloma of the transverse colon: report of a case. Surg Today **28**: 416—419, 1998
 - 30) Nakase H, Miura J, Kawasaki T et al: Endoscopic resection of small inflammatory fibroid polyp of the colon. Intern Med **39**: 25—27, 2000
 - 31) 長田拓哉, 山岸文範, 渡辺智子ほか: 虫垂炎を原因として発生した炎症性偽腫瘍の1例. 北陸外科会誌 **20**: 51—54, 2001
 - 32) 河島秀昭, 樫山基矢: 回盲部に発生した炎症性偽腫瘍の1例. 日本大腸肛門病会誌 **54**: 137—140, 2001

A Case of Inflammatory Pseudotumor Generated on Appendix

Junji Akagi, Noriaki Takahashi, Shinji Okazaki, Eiji Takai, Takahiro Takemoto,
Yasuhiro Yagishita¹⁾, Ryoichi Kurano²⁾ and Yoichi Tanoue³⁾
Department of Surgery and Department of Anesthesia¹⁾,
National Hospital Organization Kumamoto Minami Hospital
Department of Pathology, Kumamoto Medical Association Medical Center²⁾
Tanoue Clinic³⁾

A 76-year-old man complained of a right lower abdominal pain beginning in January 2005. A colonoscopy showed an elevated lesion in the cecum (30mm), and a blood analysis suggested inflammation (WBC, 13,320/ μ l., CRP, 12.6mg/dL). Although the pathological findings for a biopsy of the elevated lesion suggested a Group I lesion, the possibility of malignancy could not be ruled out. Therefore, an ileocecal resection was performed on February 2005. Phlegmonous appendicitis and an elevated lesion of the cecum extending from the entrance of the appendix to the upper part of the appendix were observed during the operation. Pathological examination of the resected specimen showed a strong, fibrous connective tissue growing on the elevated lesion but no atypical cells or tumorous growth on the epithelial cells. These findings strongly suggested that the elevated lesion was an inflammatory pseudotumor (IPT) caused by the phlegmonous appendicitis. IPT of the colon and rectum is very rare, and, to our knowledge, only 23 reports (including ours) on IPT of the colon or rectum have been made, of which six cases arose from the appendix. In this case, IPT made inflammation of the appendix worse by growing and obstructing the entrance of appendix, which suggest that IPT should be resected as soon as possible.

Key words : inflammatory pseudotumor, appendix, colon

[Jpn J Gastroenterol Surg 39 : 1718—1724, 2006]

Reprint requests : Junji Akagi Department of Surgery, National Hospital Organization Kumamoto Minami Hospital
2338 Toyofuku, Matsubase-machi, Uki, 869-0593 JAPAN

Accepted : April 26, 2006