

腹腔鏡下脾臓摘出術を行った脾原発 inflammatory pseudotumor の一例

村上 陽昭, 浦上 淳, 平林 葉子, 松本 英男, 山下 和城,
平井 敏弘, 角田 司, 柴田 憲邦*

脾原発 inflammatory pseudotumor は比較的稀な疾患であり, その術前診断も困難とされている。今回, われわれは本症に対して腹腔鏡下脾臓摘出術を行った1例を経験したので報告する。症例は68歳, 女性。前医で平成7年に右乳癌のため右乳房部分切除術を施行され, 術後定期検査で脾腫瘍を指摘された。自覚症状は無く, 血液検査でも異常を認めなかった。腹部超音波検査で脾臓に径26mm大の低エコーの腫瘍を認め, 腹部CT検査でも脾臓に約25mm大の腫瘍を認めた。腹部血管造影検査では明らかな腫瘍濃染は認めなかった。良性の原発性脾腫瘍, 乳癌の脾転移, 悪性リンパ腫などが考えられ, 診断的意義を含めて腹腔鏡下脾臓摘出術を施行した。病理組織学的に脾原発 inflammatory pseudotumor と診断された。本症は術前診断が困難な上, 脾臓摘出に診断と治療が委ねられているため, 低侵襲な腹腔鏡下脾臓摘出術が最も適していると考えられた。(平成17年4月11日受理)

Laparoscopic Splenectomy for Inflammatory Pseudotumor of the Spleen : Report of a Case

Haruaki MURAKAMI, Atsushi URAKAMI, Yoko HIRABAYASHI,
Hideo MATSUMOTO, Kazuki YAMASHITA, Toshihiro HIRAI,
Tsukasa TSUNODA and Norikuni SHIBATA*

Inflammatory pseudotumors are benign lesions which occur in a variety of organs. Inflammatory pseudotumor of the spleen is a very rare entity characterized by the histological features of nonspecific inflammatory cell infiltration and mesenchymal proliferation. It is difficult to diagnose preoperatively, because it mimics a splenic neoplasm both clinically and radiographically. A 65-year-old woman was incidentally found to have a splenic mass by abdominal ultrasonography during follow up of the postoperative course of right breast cancer eight years before. An abdominal CT scan revealed an isodensity mass in the spleen, and ultrasonography disclosed a low echoic mass. We diagnosed the mass as an inflammatory pseudotumor, a hamartoma, metastasis of the spleen, or malignant lymphoma. Then, we performed a laparoscopic splenectomy. The tumor was histologically diagnosed as an inflammatory pseudotumor of the spleen. Laparoscopic splenectomy is considered to be a useful diagnostic and/

or operative procedure for splenic tumors. (Accepted on April 11, 2005) *Kawasaki Igakkaishi* 30(3・4):195-201, 2004

Key Words ① Spleen ② Inflammatory pseudotumor
③ Laparoscopic splenectomy

はじめに

脾原発 inflammatory pseudotumor は比較的稀な疾患であり、その術前診断も困難とされている。また、その病因はいまだ不明な点も多い。今回、われわれは診断的意義も含めて腹腔鏡下脾臓摘出術を行い、組織学的に inflammatory pseudotumor と診断された 1 例を経験したので文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：68歳，女性。

主訴：無症状（検診発見）。

既往歴：平成7年4月，前医にて右乳癌で右乳房部分切除術。

現病歴：平成14年，術後定期検査の腹部CT検査で脾臓に小腫瘤を指摘された。悪性も疑われたが，腫瘤の大きさが約1cmと小さかったため，1年間経過観察された。平成15年7月に腹部超音波検査上，同腫瘤は約2cmに増大したため当院へ紹介され初診となった。

入院時現症：身長157cm，体重62kg。眼瞼結膜に貧血，黄疸を認めず，胸部の聴診にも異常を認めなかった。腹部は平坦，軟で，肝，脾を触知せず，表在リンパ節も触知しなかった。

入院時血液生化学検査：血液，生化学検査に異常は認めなかった。Alpha-1 fetoprotein (AFP)，Carcino embryonic antigen (CEA)，Carbohydrate 19-9 (CA19-9) も正常範囲内であった。

腹部超音波検査：脾臓下極に辺縁は整で境界明瞭な径26mm大の低エコーの腫瘤を認めた (Fig. 1)。カラードップラーエコーでは内部は全体的に血流が乏しかった。

腹部CT検査：単純CT検査で脾臓に約25mm

大の境界明瞭な low density area を認めた (Fig. 2)。Dynamic study の early phase では low で，late phase では low~iso を示した。

腹部血管造影検査：明らかな腫瘍濃染像は認めなかった。

以上の検査所見から，過誤腫をはじめとする良性の原発性脾腫瘍も考えられた。しかし，腫瘤の大きさが増大傾向を示していることから，乳癌の脾転移，悪性リンパ腫等の悪性疾患の可能性を否定することは困難で，診断的意義を含めた外科的切除が必要と考え，平成15年9月26日に腹腔鏡下脾臓摘出術を施行した。

手術所見：体位は右半側臥位で4本のトロッカーを挿入し手術を行った。まず胃脾間膜および短胃動脈を超音波凝固切開装置で切離，剥離

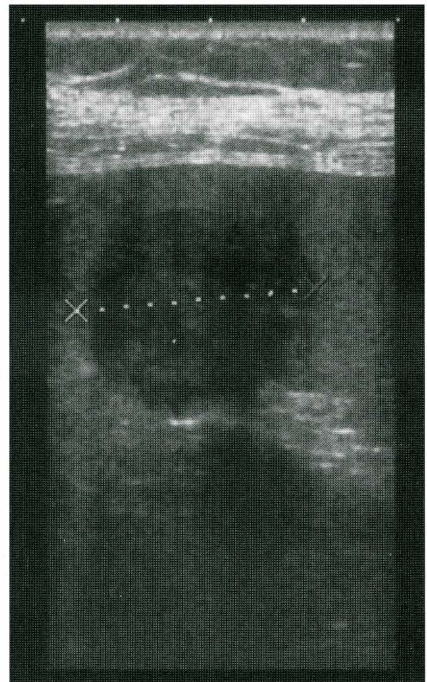


Fig. 1. 腹部超音波検査
脾臓下極に辺縁は整で境界明瞭な径26mm大の低エコーの腫瘤を認めた。

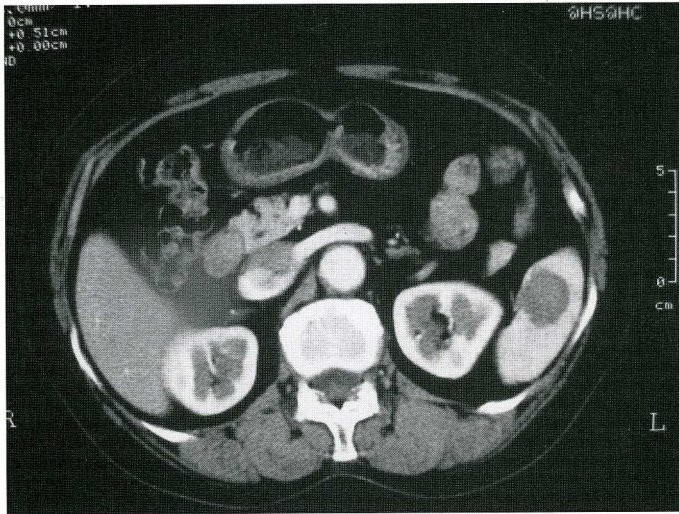


Fig. 2. 腹部造影 CT 検査

脾臓に単純 CT 検査で約 25 mm 大の境界明瞭な low density の腫瘍を認めた。Dynamic study の early phase では low で、late phase では low~iso を示した。

した。次に脾結腸間膜と横隔膜脾ヒダを切離し脾臓を遊離させた。脾門部で脾動静脈を EndoGIA® で処理し、脾臓を摘出した (Fig. 3a(上), b(下))。術中迅速病理診断で乳癌の転移は否定的と診断された。手術時間は 2 時間 30 分、出血量は 20 ml だった。

切除標本所見：脾臓の重量は 150 g で、剖面では、脾下極に 25 × 25 × 20 mm の境界明瞭で被膜を有さない、充実性腫瘤を認めた (Fig. 4)。硬さは弾性硬で、白色の剖面の中に、赤脾髄と思われる赤色結節がみられた。

病理組織学的所見：組織学的に線維成分の増加を伴っており、紡錘形細胞の増加がみられ、myofibroblast の性格を有していた。免疫染色でも血管腫や過誤腫を示唆する所見は認められず、inflammatory pseudotumor と診断された (Fig. 5a(上), b(下))。

術後経過：術後経過は良好であり、術後 7 日目に退院した。

考 察

脾原発良性腫瘍には、過誤腫、類上皮腫、脾

血管腫、脾海綿状リンパ管腫などがあり、悪性腫瘍には悪性リンパ腫、血管肉腫、転移性脾腫瘍などがある。腫瘍類似病変としては、血腫や嚢胞、梗塞、膿瘍などが挙げられる。脾原発 inflammatory pseudotumor は組織学的に非特異的炎症および、間葉系組織の修復像を主体とした良性腫瘍のひとつである。Inflammatory pseudotumor は好発臓器として、肺、肝、心臓、眼窩、リンパ節、軟部組織が挙げられる。本疾患は特徴的な臨床所見、また、特異的な画像診断法が確立していないため、その術前の確定診断は困難である。特に本症例のように、悪性疾患の既往がある場合、孤立性脾転移の可能性を

否定することができず、診断的意義を含めた脾臓摘出により、診断が確定する例がほとんどである。一般的に、悪性疾患が脾臓に転移をきたす時期のほとんどが全身性転移をきたした後であるとされている¹⁾。しかし、全身転移することなく、脾だけに転移する症例も報告されている²⁾。また、転移巣のうち 33% が病理的検索によるものとされ³⁾、術前画像診断で確定診断を得ることは極めて困難である。

脾原発 inflammatory pseudotumor の発生原因は不明であるが細菌やウイルス感染、免疫反応、限局性の出血などが示唆されている^{4), 5)}。川島らは開腹操作による腹腔内、後腹膜の異常な免疫反応の可能性を示している⁴⁾。その他に癌細胞自身が産生する transforming growth factor beta (TGF-β) が癌巣周囲の正常細胞に作用し、細胞外マトリクスの蓄積、血管新生、免疫抑制や EMT (上皮-間葉移行)などを引き起こしたり⁶⁾、また TGF-β によって肉芽組織の線維芽細胞の α-actin の増加、すなわち myofibroblast の分化が報告されている⁷⁾。本症例は乳癌の既往があり、また病理組織像では myofibroblast の性格を有していたことから、TGF-β の作用

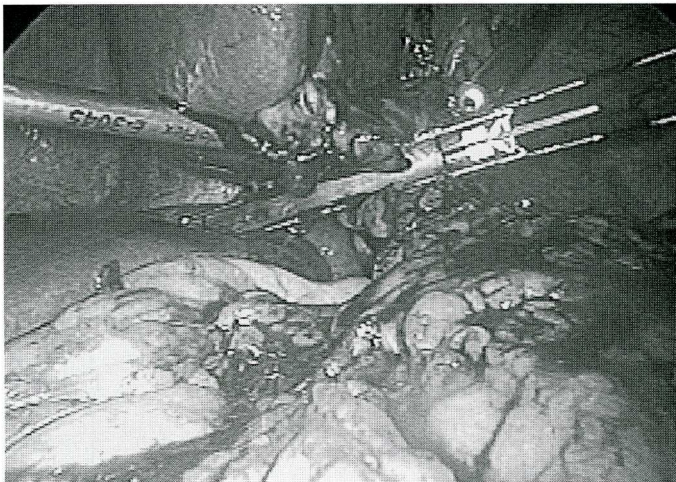
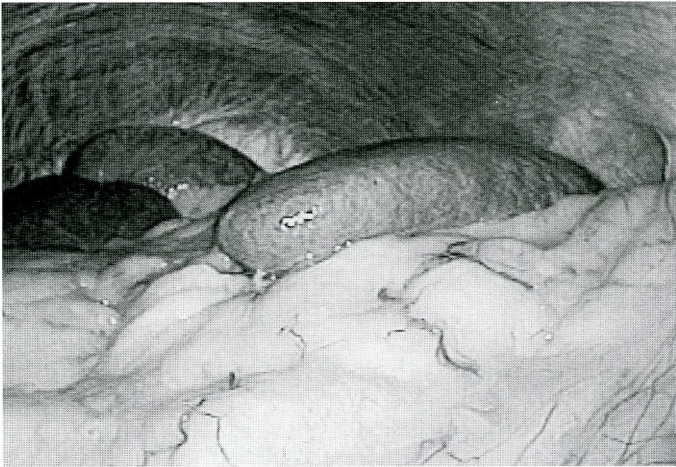


Fig. 3. 術中写真

3a(上): 腹腔鏡で観察すると、脾腫は認めず、脾臓表面には腫瘍による変化は認めなかった。3b(下): 周囲を剥離し、脾臓を遊離させた後、脾動静脈を EndoGIA® で処理し摘出した。

を発端とする、細胞の分化、増殖の局所的な異常による可能性も考えられた。

脾臓の inflammatory pseudotumor については自験例を含め検索し得た限りでは本邦では約65症例が報告されている。本症例を含め、無症状で発見された例が多い。また、血液検査では炎症反応に乏しい症例がほとんどであった⁸⁾。

Table 1 に、脾原発 inflammatory pseudotumor を含めて、主な脾原発腫瘍の画像的特徴についてまとめた⁹⁾。画像検査では超音波検査で多くの

例で低エコーな腫瘍を認め、少数で高エコーの腫瘍を認めた⁸⁾。腫瘍の線維化の割合によって、このような違いが生じたと考えられる。超音波検査では多くの脾原発腫瘍で低エコーな腫瘍を示し、鑑別は困難であった。本症例では MRI 検査は施行しなかったが、T1WI で低信号、T2WI で低信号を示す傾向がみられた⁸⁾。これは線維化組織を描出したものと考えられる¹⁰⁾。脾原発 inflammatory pseudotumor の腫瘍内の線維増生を、プロトン密度強調画像と T2WI による線状

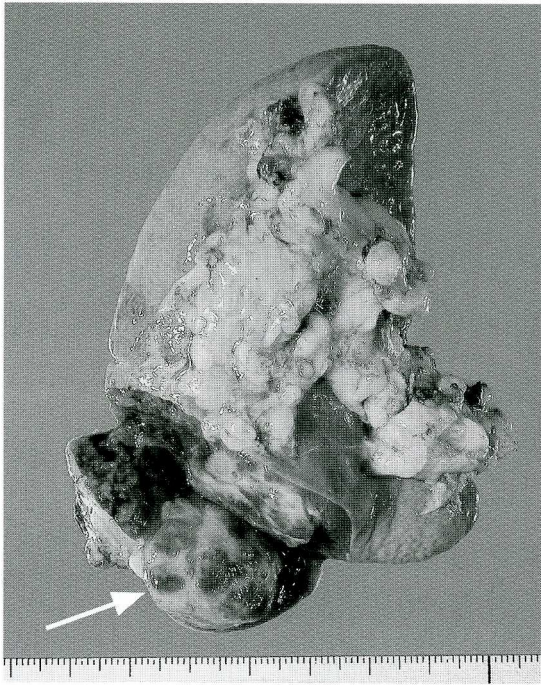


Fig. 4. 摘出標本

断面では脾下極に $25 \times 25 \times 20$ mm の境界明瞭で被膜を有さない、充実性の腫瘍を認めた。硬さは弾性硬で、白色の断面の中に、赤脾髄と思われる赤色結節がみられた。

あるいは結節状の低信号により描出できるといった意見がある。このことは、転移性腫瘍との鑑別に有用と考えられる。しかしながら、過誤腫、悪性リンパ腫においても、線維化を示す部分が含まれており、プロトン密度強調像と T2WI による線状あるいは結節状の低信号が脾原発 inflammatory pseudotumor の決定的な鑑別点とはなりえないと考えられた¹¹⁾。血管造影検査ではほとんどの例で腫瘍濃染が無く、2例で腫瘍濃染を認めた。血管造影検査では、脾血管腫、脾血管肉腫との鑑別に有用であった。本症例では Ga シンチグラフィーは施行しなかったが、Ga シンチグラフィーでは 21 例中 2 例に異常集積を認めた⁸⁾。腹部単純 CT 検査で低吸収の腫瘤を示し、腹部造影 CT 検査で造影効果がある傾向があり、類上皮腫、脾リンパ管腫との鑑別に有用と考えられる。過誤腫は主要な構成成分により、画像所見が異なるため、鑑別

を困難としている。今回、我々は腹部超音波検査、腹部 CT 検査、腹部血管造影検査により脾腫瘍の鑑別を試みた。脾原発 inflammatory pseudotumor はある程度の画像的特徴を持ち得るが、過誤腫、転移性悪性腫瘍、悪性リンパ腫の鑑別は困難であり、画像検査には限界があるように思われた。

本症は良性疾患のため、確定診断がつけば、経過観察の可能性もありうる。自検例を含めて 11 例で経過観察とした報告がみられた。2 例は腫瘍の増大がみられなかったが、9 例では腫瘍の増大を認めた⁸⁾。藤田ら⁵⁾は腫瘍性の増殖に起因した腫瘍が否定できる場合は定期的な経過観察にとどめ、明らかな症状を認めたり、腫瘍性の腫瘍の可能性が否定し得ない場合は積極的に脾臓摘出を行うべきとしている。脾原発 inflammatory pseudotumor は良性疾患であるため、予後は良好である。但し、本邦報告例ではすべて脾臓摘出術が行われており、長期の経過観察例の報告はない。現在のところ、脾原発 inflammatory pseudotumor による脾破裂の報告はない。しかし、腫瘍増大による、脾破裂の可能性も考えられ、経過観察中に腫瘍の増大を認めた場合には、早期に脾臓摘出術が必要と考える。一方、悪性疾患の既往がある場合は脾転移の可能性を否定できないことから、発見された時点で、早期の脾臓摘出術が必要と考える。本邦では平川ら¹²⁾は腹腔鏡下狙撃生検で Hodgkin 病を診断し得た一例を報告しているが、悪性腫瘍の腹腔内散布の可能性も考えられる。一方で、富家ら¹³⁾は本症に対する針生検は得られる検体が量的に不十分な可能性があるとしている。術前確定診断法は今後の課題であるが、現時点では完全生検である腹腔鏡下脾臓摘出術のほうが妥当と考えられる。

本症に対して、報告例の全例で脾臓摘出術が行われているが、腹腔鏡下脾臓摘出術の報告例は自験例を含めて 5 例と少ない⁸⁾。しかし、2001 年までに本邦では約 1600 件に腹腔鏡下脾臓摘出術が行われており¹⁴⁾、腹腔鏡下手術は脾臓摘出術の標準術式になりつつある。開腹手術に

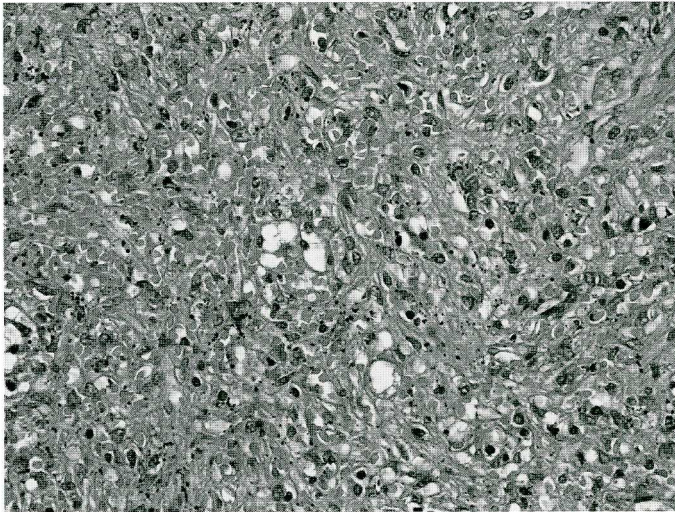
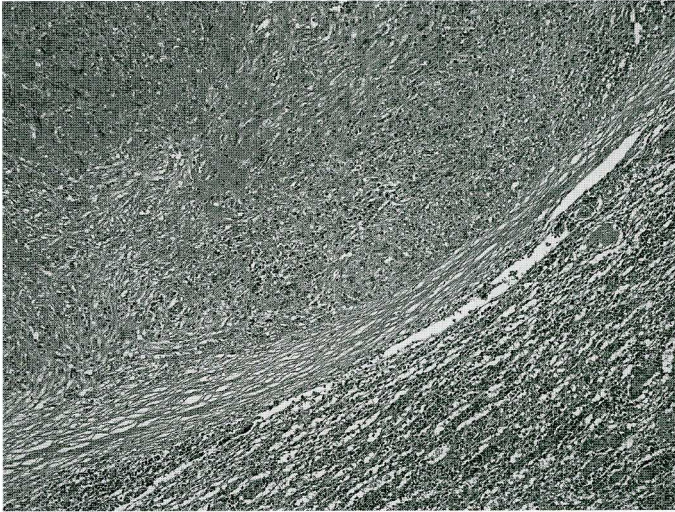


Fig. 5. 病理組織学的所見 5a(上): HE × 40, 5b(下): HE × 100
腫瘍は線維成分の増加を伴っており, 紡錘形細胞の増加がみられ,
myofibroblast の性格を有していた.

比較して, 腹腔鏡下脾臓摘出術の利点は, 腸管機能の早期回復, 入院日数の短縮, 術後疼痛の軽減, 創部の縮小があげられる. また, 欠点としては, 術中出血, 手術時間の延長がいわれてきた. 悪性腫瘍における腹腔鏡下手術で問題となる port site recurrence に関して, 平田ら¹⁵⁾は悪性疾患との術前確定診断の困難さから, 本症に対する腹腔鏡下脾臓摘出術の選択は慎重に対

処すべきとしているが, 現在のところ, 脾腫瘍における port site recurrence の報告例はまだ無いようである.

本症例では手術時間, 出血量とも開腹手術と遜色なく, 術後7日で退院可能であったので, 結果的には腹腔鏡下脾臓摘出術が適当であったと考えられる. 本症は術前診断が困難なため脾臓摘出が診断と治療を兼ねており, 現状ではな

Table 1. 脾原発腫瘍の画像的特徴（文献9より改編）

	腹部超音波検査	腹部CT検査		血管造影検査
		単純	造影	
類上皮腫	後方エコー増強、内部均一な anechoic mass	low density	enhancement(-)	avascular area
脾血管腫	highchoic mass	low density	enhancement(-)	cotton-wool-like
リンパ管腫	辺縁不整で多発する hypochoic mass	low density	enhancement(-)	Swiss cheese appearance
悪性リンパ腫	境界不明瞭、多発性の hypochoic mass	low density	enhancement(-)	hypovascular area
血管肉腫	境界不明瞭、多発性の hypochoic mass	low density	enhancement(+)	hypervascular area
転移性悪性腫瘍	非特異的	low density	enhancement(+)	非特異的
炎症性偽腫瘍	hypochoic mass	low density	enhancement(+)	hypovascular area

るべく低侵襲である腹腔鏡下脾臓摘出術が最も適していると考えられた。

参 考 文 献

- 1) 今田 肇, 中田 肇, 堀江昭夫: 転移性脾腫瘍の画像診断および剖検例における頻度. 日医放線会誌 51: 498-503, 1991
- 2) Duunbar WH, Beahrs OH, Morlock CG: Solitary splenic metastases incidental to rectal carcinoma: Report of a case. Mayo Clin Proc 44: 40-45, 1969
- 3) Marymount JH Jr: Patterns of metastatic cancer in the spleen. Am J Clin Pathol 4: 58-60, 1963
- 4) 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. 日消外会誌 33: 357-361, 2000
- 5) 藤田佳史, 生駒久視, 中西正芳, 小黒 厚, 千森美郎, 宮元祐二, 南里正明, 山根越夫, 西岡文三: 脾の炎症偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) の1例. 京府医大誌 107: 703-707, 1998
- 6) Blobe GC, Schieman WP, Lodish HF: Role of transforming growth factor- β in human disease. N Engl J Med 342: 1350-1358, 2000.
- 7) Desmouliere A, Geinoz A, Gabbiani F, Gabbiani G: Transforming growth factor beta-1 induces alpha-smooth muscle actin expression in granulation tissue myofibroblasts and in granulation tissue myofibroblasts and in quiescent and growing cultured fibroblasts. J Cell Biol 122: 103-111, 1993
- 8) 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. 日消外会誌 37: 187-192, 2004
- 9) 岩崎正彦, 中山隆雅, 檜山義明: 原発性脾腫瘍における画像診断. 臨放線 33: 673-678, 1988
- 10) 片桐科子, 西巻 博, 池田俊昭, 磯部義憲, 松林 隆, 刑部東治, 岩淵啓一: 脾 Inflammatory pseudotumor のCT・MRI 所見. 臨放線 39: 1635-1638, 1994
- 11) 可知謙治, 大友 邦, 門澤秀一他: 脾 inflammatory pseudotumor のCT, MRI 所見. 臨放線 38: 669-674, 1993
- 12) 平川晴久, 道免和文, 山野裕二郎, 大森房之, 長野政則, 溝口幹朗, 岩田 康, 石橋大海: 腹腔鏡下狙撃生検で Hodgkin 病を診断しえた一例. Gastoroenterological Endoscopy 35: 93-99, 1993
- 13) 富家文孝, 飯田茂晴, 加藤武晴, 伊藤博敏, 岡本将裕, 徳弘光邦, 川瀬友子, 大野浩司: 脾 Inflammatory pseudotumor の1例. 臨放線 42: 1071-1074, 1997
- 14) 日本内視鏡外科学会: 第6回全国アンケート調査. 日鏡外会誌 7: 514-516, 2002
- 15) 平田稔彦, 山根隆明, 松金秀暢: 脾炎症性偽腫瘍の2例. 日臨外会誌 62: 3040-3044, 2001