

若年発症の前立腺炎症性偽腫瘍の1例

独立行政法人国立病院機構岡山医療センター泌尿器科¹⁾ 岡山大学病院泌尿器科²⁾

佐久間貴文*¹⁾・丸山雄樹²⁾・定平卓也²⁾・高本 篤²⁾・和田耕一郎²⁾

小林泰之²⁾・荒木元朗²⁾・渡部昌実²⁾・渡辺豊彦²⁾・那須保友²⁾

(受付日: 2020 月 6 月 23 日, 受理日: 2021 月 3 月 1 日)

抄録:

症例は19歳, 男性。抗菌薬投与で改善しない排尿障害, 排尿時痛を主訴に前医を受診。MRIで前立腺のT1強調像, T2強調像ともに低信号で, 造影効果を伴う膀胱内に突出する腫瘍を指摘され当院紹介となった。血液, 尿検査では特記事項なく, 尿培養, 尿細胞診は陰性であった。PSAを含め腫瘍マーカーの有意な上昇を認めなかった。膀胱鏡検査では前立腺部尿道に約35mmの非乳頭状広基性腫瘍を認めた。造影CTでは前立腺部にMRI同様の所見を認め, リンパ節腫大及び遠隔転移は認めなかった。排尿障害改善及び組織検査目的に経尿道的前立腺切除術(TUR-P)を施行した。切除組織は長紡錘形細胞の束状の増殖とリンパ球, 形質細胞浸潤を認め, 免疫染色でALK(anaplastic lymphoma kinase)陽性, α -smooth muscle actinが少数の細胞で陽性であり, 前立腺炎症性偽腫瘍(inflammatory pseudotumor: IPT)と診断した。局所再発の可能性はあるものの, 遠隔転移の可能性は低く, 排尿状態の改善を得られたため経過観察の方針とした。術後10カ月現在で腫瘍の再燃を認めていない。

(西日泌尿. 83: 54-58, 2021)

キーワード: 炎症性偽腫瘍, 前立腺

結 言

炎症性偽腫瘍(inflammatory pseudotumor: IPT)は肉眼的には悪性腫瘍と類似するが, 組織学的には炎症性細胞のみからなる悪性所見を伴わない疾患であり, 肺が好発部位として知られている。泌尿器科領域においては, 尿路において報告はあるものの, 前立腺原発のものは極めて報告が少ない。今回前立腺に原発したIPTの1例を経験したため報告する。

症 例

患者 19歳, 男性

主訴 排尿困難, 排尿時痛

既往歴 耳瘻孔摘出(時期不明)

家族歴 特記事項なし

現病歴 2018年10月, 排尿困難, 排尿時痛を自覚し近医にて抗菌薬, 抗コリン薬を処方された。同年11月に症状改善なく前医を受診し, ウラピジル(エブランチル[®])へと変更となった。精査目的に行ったMRI検査で

前立腺腫瘍を指摘され同年12月に当科紹介初診となった。

初診時現症 胸腹部や外陰部の身体所見に異常は認めなかった。初診時のIPSSは13点, QOL scoreは4点であった。直腸診で前立腺は弾性軟, 圧痛はなく硬結は触れなかった。

初診時検査成績 血液一般検査: WBC 5340/mm³, RBC 525 × 10⁴/mm³, Hb 17.0 g/dl, Plt 17.9 × 10⁴/mm³, 血液生化学検査: Na 139 mEq/l, K 4.7 mEq/l, Cl 104 mEq, AST 19 U/L, ALT 21 U/L, G-GTP 20 U/L, 腫瘍マーカー: PSA 1.00 ng/ml, CEA 1.07 ng/ml (基準値<5 ng/ml), CA19-9 3.7 U/ml (基準値<40 IU/ml), ProGRP 32.7 pg/ml (基準値<81 pg/ml), SCC 0.7 ng/ml (基準値<1.5 ng/ml), 尿検査: pH 5.5, 比重 1.015, 蛋白(±), 糖(-), WBC 8.4 個/HF, RBC 4.0 個/HF, 尿培養: 陰性, 尿細胞診: class II

膀胱鏡所見 前立腺部尿道から膀胱に突出する約35mmの非乳頭状広基性腫瘍を認めた(Fig. 1)。

画像所見 前医でのMRI検査ではT1強調像, T2強調像ともに低信号を呈する前立腺から膀胱内に突出する34.6 mm大の腫瘍性病変を認めた(Fig. 2A)。造影

* 〒701-1192 岡山県岡山市田益 1711-1

TEL 086-294-9911, FAX 086-294-9255

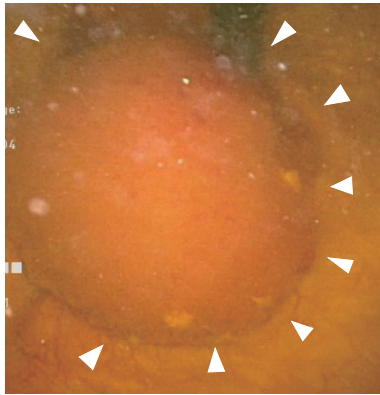


Fig. 1 Cystoscopy reveals a broad-based nonpapillary tumor measuring approximately 35 mm in diameter within the prostatic urethra.

MRI 検査では早期相から淡く造影され後期相まで造影効果が残る, wash out されない腫瘍を認めた (Fig. 2B)。造影 CT 検査では MRI 検査同様に早期相から後期相まで造影効果の残る腫瘍を認めた。前立腺外や膀胱外への浸潤はなく, 腫大及び遠隔転移を認めなかった。

経過 これらの膀胱鏡所見及び画像所見より, 前立腺肉腫を疑った。診断目的に前立腺針生検も検討したが, 急速な排尿障害増悪に加えて, 針生検では組織採取量が少なく診断に至らない可能性も考慮し, TUR での組織採取の方針とした。2019 年 1 月に経尿道的前立腺切除術 (TUR-P) を施行した。

術中所見 術前検査同様に, 前立腺部尿道から膀胱に突出する約 35 mm の非乳頭状広基性腫瘍を認めた。前立腺部尿道を十分開大するまで切除を行った。切除断面

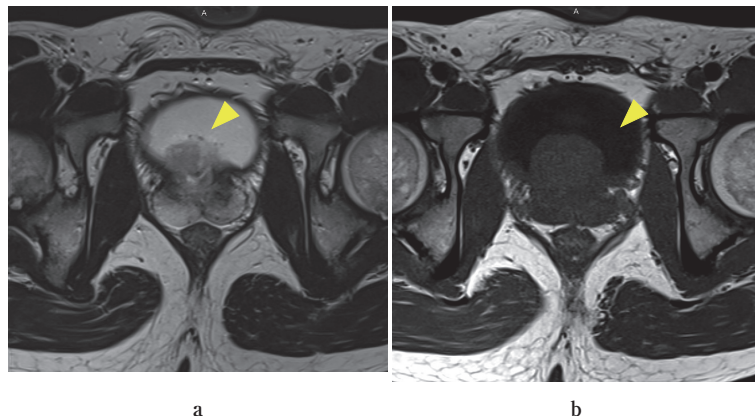


Fig. 2 A: MRI shows low density on both T1-(a) and T2-(b) weighted images of the prostate.

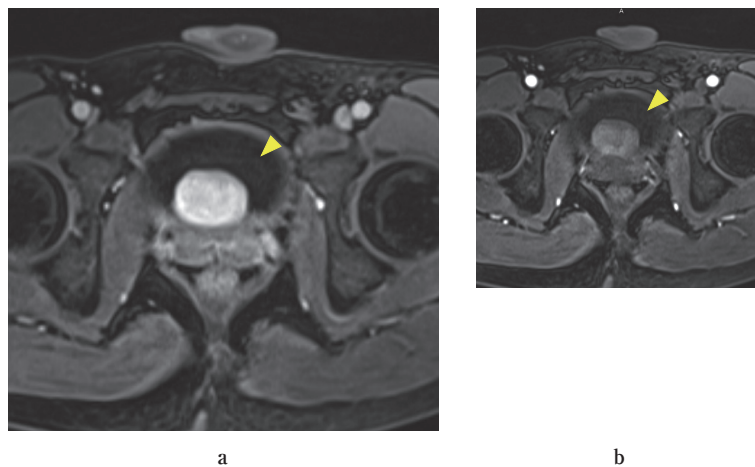


Fig. 2 B: Contrast-enhanced MRI shows a mass protruding into the bladder; it is enhanced in the early phase (a), and remains unwashed in the late phase (b).

は白色調であった。

病理組織学的所見 長紡錘形細胞のゆるい束状の増殖が見られ、腫瘍内にはリンパ球、形質細胞の浸潤が見られた (Fig. 3A)。免疫染色では腫瘍細胞の多くで細胞質に ALK 陽性の所見が見られた (Fig. 3B)。 α -smooth muscle actin は少数の細胞で陽性であった。Desmin, myogenin, CD34 は陰性であった。細胞異型は見られなかった。以上より、前立腺に発生した炎症性繊維芽細胞性腫瘍 (inflammatory myofibroblastic tumor : IMT) と診断した。

臨床経過 術後、排尿障害の改善を認めた。局所再発の可能性はあるが、遠隔転移のリスクは低いと判断し経過観察の方針とした。術後 10 カ月時点で再発なく経過し、IPSS 0 点と排尿状態も良好である。

考 察

IPT とは組織学的には筋繊維芽細胞 (myofibroblastic cell) や myxoid 成分を伴った炎症性細胞の非腫瘍性増殖とされ、全身の様々な臓器に発生し得る比較的まれな疾患である¹⁾。2002 年の WHO 分類では IPT と IMT は同義語とされ、好発部位は肺・腸管などで、まれに遠隔転移を有する良悪性中間の腫瘍と位置付けられ²⁾、発育は緩徐とされている。組織学的には繊維芽細胞の特徴を示す長紡錘形細胞の緩い束状の増殖を認め、リンパ球や形質細胞などの炎症細胞の浸潤が著明であるとされる。細胞異型がなく約 50% で細胞質に ALK の発現を認める³⁾。しかし、近年、腫瘍成分を持つ IMT は非腫瘍性の IPT とは区別されるべき疾患とする考えもある⁴⁾。

慢性炎症や慢性疾患、免疫異常などが誘因とする報告⁵⁾がみられるが、特に誘因を認めない特発性のものあり⁶⁾、まだ一定の見解は得られていない⁷⁾。自験例においては誘因と考えられる既往がなく特発性のものであ

たとえられる。

泌尿器科領域においては膀胱発生が最多であり、1980 年に Roth らが報告したのが初である⁸⁾。前立腺発生の IPT についての報告^{9)~16)}をみると、症状は前立腺肥大症様で、全例に排尿困難を来しており、尿閉を伴う場合や、膀胱刺激症状や血尿を来している症例も見られた。発症年齢は若年から高齢者まで幅広く分布するが、30~50 歳代の中年に多い傾向にある。報告されている症例の年齢中央値は 42 歳で前立腺肥大症や前立腺癌と比較して若年層に多い傾向がうかがえる。本症例においては海外報告も含め調べる限りでは最若年の症例であった。

膀胱尿道鏡では表面平滑な非乳頭上隆起性腫瘍を認めることが多い。MRI 検査では典型的には T1 強調像で低信号、T2 強調像で辺縁が高信号で中心部は低信号な病変を認めることが多いとされているが¹⁾、特徴的な画像検査には乏しく、画像のみで診断をつけるのは非常に困難である。そのため、診断には病理組織学的診断が必要である。しかし、生検のみで確定診断が困難な場合も多く、組織採取量が問題となる。診断的治療として TUR-P が選択されることが多いが、悪性腫瘍を疑われ、前立腺全摘除術が行われた症例もあった。TUR-P が行われた症例の多くは症状の改善が得られているが、局所再発の報告もみられる。本症例においては 19 歳と最若年の症例であり、性活動期であるため治療の選択に苦慮したが、悪性腫瘍を否定するのが困難である点から、診断目的に TUR-P を選択せざるを得なかった。

IPT は、定まった治療法というものは確立されていない。肺や肝ではステロイドや抗菌薬による保存的加療で自然消退を認めた症例⁹⁾や、無治療で自然消退を認めた症例¹⁷⁾も報告されているが、再発例や悪性転化を来した例もみられることから、治療についての検討も今後の課

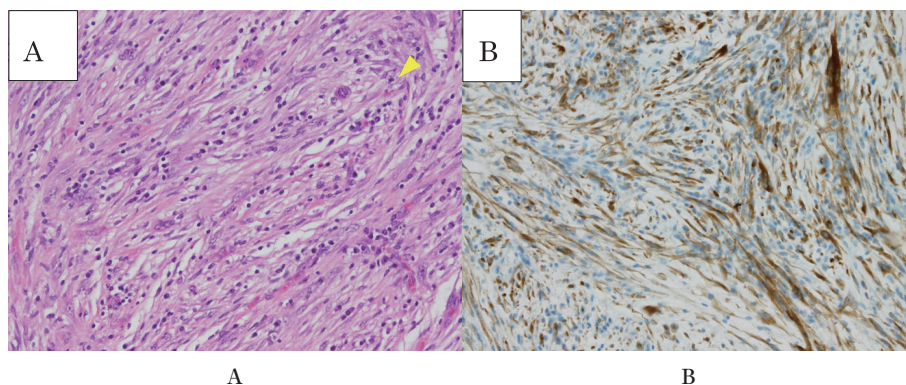


Fig. 3 A: HE staining of bundled proliferation of long spindle-shaped cells.
B: Immunohistochemical staining for ALK is positive.

題と考えられる。

結 語

前立腺原発のIPTを経験したため文献的考察を加えて報告した。TUR-Pにより症状は軽快し現在再発は認めていない。

本文の趣旨は第69回西日本泌尿器科学会総会で発表した。

文 献

- 1) Takeuchi, M.: 膀胱 (解説/特集)。臨床画像。26: 43, 2010.
- 2) Coffin, C. M. and Fletcher, J. A.: Inflammatory myofibroblastic tumor. In Fletcher, C. D. et al. Pathology and Genetics of Tumours of Soft Tissue and Bone. World Health Organization Classification of Tumors.: 91-93, 2002.
- 3) 山田英崇・小田義直: 炎症性繊維芽細胞性とその周辺疾患。病理と臨床。30: 258-264, 2012.
- 4) 木下義晶・他: 炎症性偽腫瘍, 炎症性繊維芽細胞性腫瘍の臨床病理学的検討。日小外会誌。43: 427, 2007.
- 5) Jones, E. C. et al.: Inflammatory pseudotumor of the urinary bladder. Am. J. Surg. Pathol. 17: 264-274, 1993.
- 6) 香川純一郎・他: 膀胱炎症性偽腫瘍の1例。西日泌尿。75: 572-575, 2013.
- 7) 丸山雄樹・他: 自然消失した膀胱炎症性偽腫瘍の1例。西日泌尿。80: 465-468, 2018.
- 8) Roth, J. A.: Reactive pseudosarcomatous response in urinary bladder. Urology. 16: 635-637, 1980.
- 9) Hafiz, M. A. et al.: An atypical fibromyxoid tumor of the prostate. Cancer. 54: 2500-2504, 1984.
- 10) Tetu, B. et al.: Atypical spindle cell lesions of the prostate. Semin. Diagn. Pathol. 5: 284-293, 1988.
- 11) Sahin, A. A. et al.: Pseudosarcomatous fibromyxoid tumor of the prostate: a case report with immunohistochemical, electron microscopic, and DNA flow cytometric analysis. Am. J. Clin. Pathol. 96: 253-258, 1991.
- 12) 大沢由紀・他: 前立腺部尿道より発生した Inflammatory Pseudotumor の1例。熊本医学会誌。71: 107-108, 1997.
- 13) Jones, E. C. et al.: Inflammatory pseudotumor of the urinary bladder: a clinicopathological, immunohistochemical, ultrastructural, and flow cytometric study of 13 cases. Am. J. Surg. Pathol. 17: 264-274, 1993.
- 14) Cespedes, R. D. et al.: Pseudosarcomatous fibromyxoid tumor of the prostate: a case report with review of the literature. Urol. Int. 57: 249-251, 1996.
- 15) Jensen, J. B. et al.: Pseudosarcomatous fibromyxoid tumor of the prostate. Scand. J. Urol. Nephrol. 37: 85-87, 2003.
- 16) 倉本朋未・他: 前立腺炎症性偽腫瘍の1例。泌尿器科紀要。51: 767-770, 2005.
- 17) 山下 亮・他: 肉腫との鑑別が困難であった膀胱炎症性偽腫瘍の1例。日泌尿会誌。97: 668-671, 2006.

INFLAMMATORY PSEUDOTUMOR OF THE PROSTATE: A CASE REPORT

TAKAFUMI SAKUMA

Okayama Medical Center, Okayama, Japan

YUKI MARUYAMA, TAKUYA SADAHIRA, ATUSHI TAKAMOTO,
KOICHIRO WADA, YASUYUKI KOBAYASHI, MOTOO ARAKI,
MASAMI WATANABE, TOYOHICO WATANABE, AND YASUTOMO NASU

Department of Urology, Okayama University Hospital, Okayama, Japan

Abstract:

We report the case of a 19-year-old male who presented with the complaints of dysuria and pain on urination that did not improve with antimicrobial medication. MRI showed low density on both T1- and T2-weighted images of the prostate, and contrast-enhanced MRI showed a mass protruding into the

bladder. The patient was referred to our hospital because of a suspected prostate tumor. Blood and urine tests, urine culture, and urine cytology were all negative. There was no predominant increase in the level of tumor markers, including PSA. Cystoscopy revealed a broad-based nonpapillary tumor of approximately 3 cm in diameter in the prostatic urethra. Contrast-enhanced computed tomography showed the same findings as those of MRI in the prostate, with no lymph node enlargement or distant metastasis. Transurethral resection of the prostate was performed to improve the dysuria and obtain a specimen for histological examination. After surgery, the urinary status was improved. The resected tissue showed bundled proliferation of long spindle-shaped cells and lymphocytic and plasmacytic infiltration. Anaplastic lymphoma kinase (ALK) and α -smooth muscle actin were both positive by immunostaining. Based on these findings, an inflammatory myofibroblastic tumor of the prostate was diagnosed. As there was a possibility of local recurrence, the patient underwent follow-up observation. To date, there has been no recurrence, at 10 months postoperatively. (Nishinoh J. Urol. 83 : 54-58, 2021)

key words : Inflammatory pseudotumor, Prostate
