

## 腫瘍形成をきたしたIgG4関連前立腺炎の一例

弓場健太郎<sup>1,3)</sup>, 林奈津子<sup>2,3)</sup>, 喜馬真希<sup>3)</sup>, 粥川成優<sup>4)</sup>, 小西英一<sup>5)</sup>, 山田 恵<sup>3)</sup>

<sup>1)</sup>京都山城総合医療センター 放射線科

<sup>2)</sup>JCHO 神戸中央病院 放射線科

<sup>3)</sup>京都府立医科大学大学院医学研究科 放射線診断治療学

<sup>4)</sup>京都鞍馬口医療センター 泌尿器科

<sup>5)</sup>京都府立医科大学大学院医学研究科 人体病理学

### キーワード

IgG4-related disease (IgG4-RD), IgG4-related prostatitis, prostatic carcinoma  
prostate specific antigen (PSA), Prostate Imaging Reporting and Data System (PI-RADS)

©日本放射線科専門医会・医会

### はじめに

IgG4関連疾患はIgG4陽性形質細胞が全身のあらゆる臓器に浸潤する慢性の線維性炎症性疾患である<sup>1)</sup>。IgG4関連前立腺炎の頻度は泌尿生殖器領域においては腎病変に次ぐとの報告がある<sup>2)</sup>が、その画像所見についての報告は少ない。今回、前立腺内に腫瘍を形成し、前立腺癌との鑑別が必要となったIgG4関連前立腺炎の症例を経験したため報告する。

### 症例

50歳台、男性。

主訴：夜間頻尿、排尿困難

現病歴：18ヶ月前に左頸部リンパ節腫脹に対し切除生検術を受け、良性病変と診断を受けた。10ヶ月前に結膜炎症状が出現し、4ヶ月前にCTで両側涙腺腫大を認め左涙腺生検でIgG4関連涙腺炎と診断され当院総合診療科を紹介受診した。IgG4関連疾患の全身検索のため2ヶ月前に造影CTを撮像し、両側涙腺、頸部および縦隔リンパ節腫大、肺、胸椎周囲、肝に病変を認めた。縦隔リンパ節および肝腫瘍に生検術を施行し、いずれもIgG4関連

疾患病変と診断された。2020改訂IgG4関連疾患包括診断基準において、1)臨床的及び画像的診断、2)血清学的診断、3)病理学的診断(涙腺・縦隔リンパ節・肝)の全てを満たしており、確定診断群(definitive)と診断された<sup>3)</sup>。同時期より夜間頻尿および排尿困難が出現し、IgG4関連前立腺炎が疑われたため、当院泌尿器科に紹介となった。

既往歴：特記なし

尿検査：尿中赤血球10-19/HPF、尿中白血球<1/HPF、尿中細菌 陰性

血液検査：PSA 4.59 ng/ml (基準値0.0-4.0)、IgG 3473 mg/dl (基準値870-1700)、IgG4 2060 mg/dl (基準値11-121)、CRP 0.41 mg/dl (基準値0.00-0.14)

CT(泌尿器科受診2ヶ月前、造影平衡相、図1)：頸部および縦隔リンパ節腫大を認める(図1a, b)。両肺に気管支血管束の肥厚、左肺S9に結節を認める(図1c, d)。胸椎椎体周囲に帯状の軟部濃度を示す腫瘍を認める(図1e)。肝S4に不整形低吸収腫瘍を認める(図1f)。その他にも肝両葉に同様の腫瘍が多発している。前立腺内腺の腫大を認める(図1g)。

受領：2024年7月15日 採扱：2024年11月15日

責任著者：林 奈津子

京都府立医科大学大学院医学研究科 放射線診断治療学

〒602-8566 京都府京都市上京区河原町通広小路上ル梶井町465

E-mail: hayashin@koto.kpu-m.ac.jp

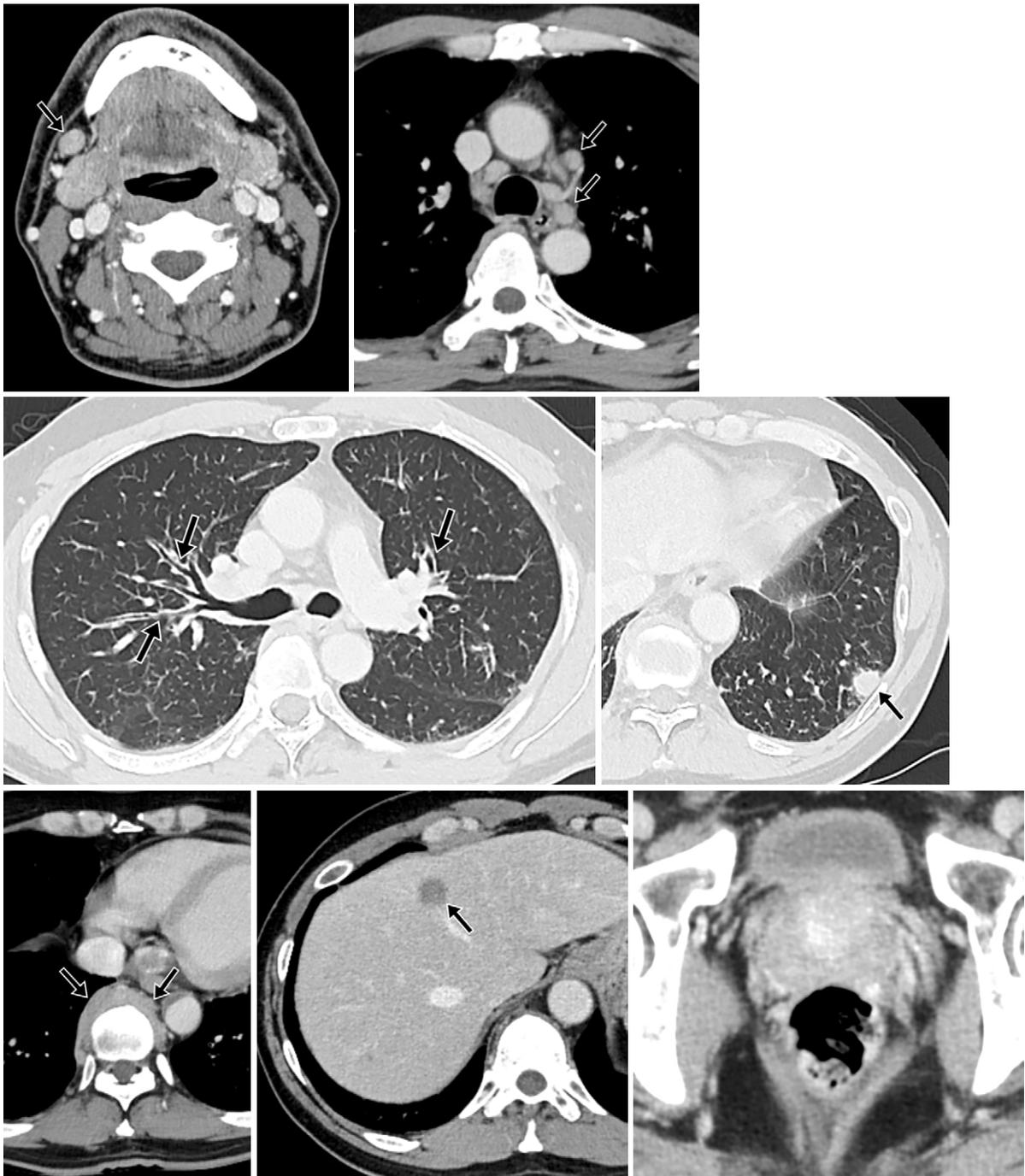


図1 CT画像

頸部および縦隔リンパ節腫大を認める (a, b)。両肺に気管支血管束の肥厚 (c)、左肺S9に結節 (d) を認める。T9椎体周囲に帯状の軟部濃度を示す腫瘍 (e)、肝S4に低吸収腫瘍 (f) を認める。前立腺内腺の腫大を認める (g)。

a	b
c	d
e	f   g

Fig.1 Axial contrast-enhanced computed tomography images

Axial contrast-enhanced computed tomography images show enlargement of the neck and mediastinal lymph nodes (a, b). Bronchovascular bundle thickening is observed in both lungs (c), along with a nodular opacity in the left lung's segment 9 (d). In addition, a soft tissue density tumor is identified around the T9 vertebral body (e), and a hypoattenuating lesion is found in segment 4 of the liver (f). Prostate gland enlargement is also seen (g).

骨盤部 MRI (図2)：前立腺移行域に33mm大の辺縁不明瞭な腫瘍を認める。内部はT2強調像で均一な中等度低信号，拡散強調像では著明な高信号，ADC値の低下(ADC値は $0.647 \times 10^{-3} \text{mm}^2/\text{sec}$ )を示し，ダイナミック造影では早期増強効果を示す。以上から，PI-RADS カテゴリー

5相当と診断した。

前立腺体積=44.2ml，PSA density=0.10ng/ml/cm<sup>3</sup>

経過1：前立腺腫瘍は比較的サイズが大きいにも関わらず，PSAは軽度高値に留まり，PSA densityはカットオ

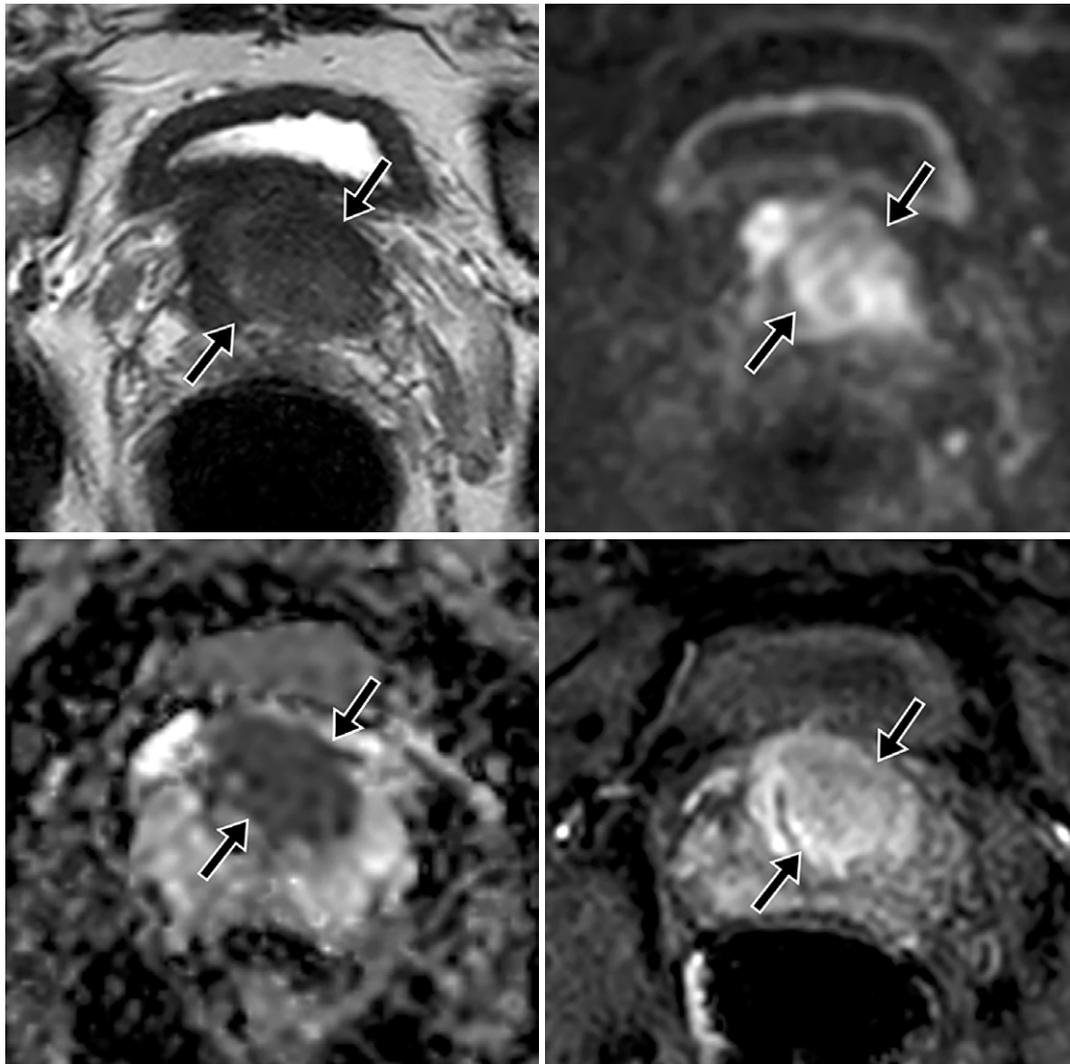


図2 MRI画像

a: T2強調像

b: 拡散強調像(b値1,500s/mm<sup>2</sup>)

c: ADC map

d: 造影Dynamic MRI (早期相)

前立腺移行域に辺縁不明瞭な腫瘍を認め，均一な中等度低信号を示す(a)。腫瘍は拡散強調像で著明高信号，ADC値の低下，早期造影増強効果を示す(b-d)。

a	b
c	d

Fig.2 Magnetic resonance imaging findings

a: Axial T2-weighted magnetic resonance image

b: Axial diffusion-weighted image (b-factor=1,500s/mm<sup>2</sup>)

c: Axial apparent diffusion coefficient (ADC) map

d: Early contrast-enhanced T1-weighted fat-suppressed image

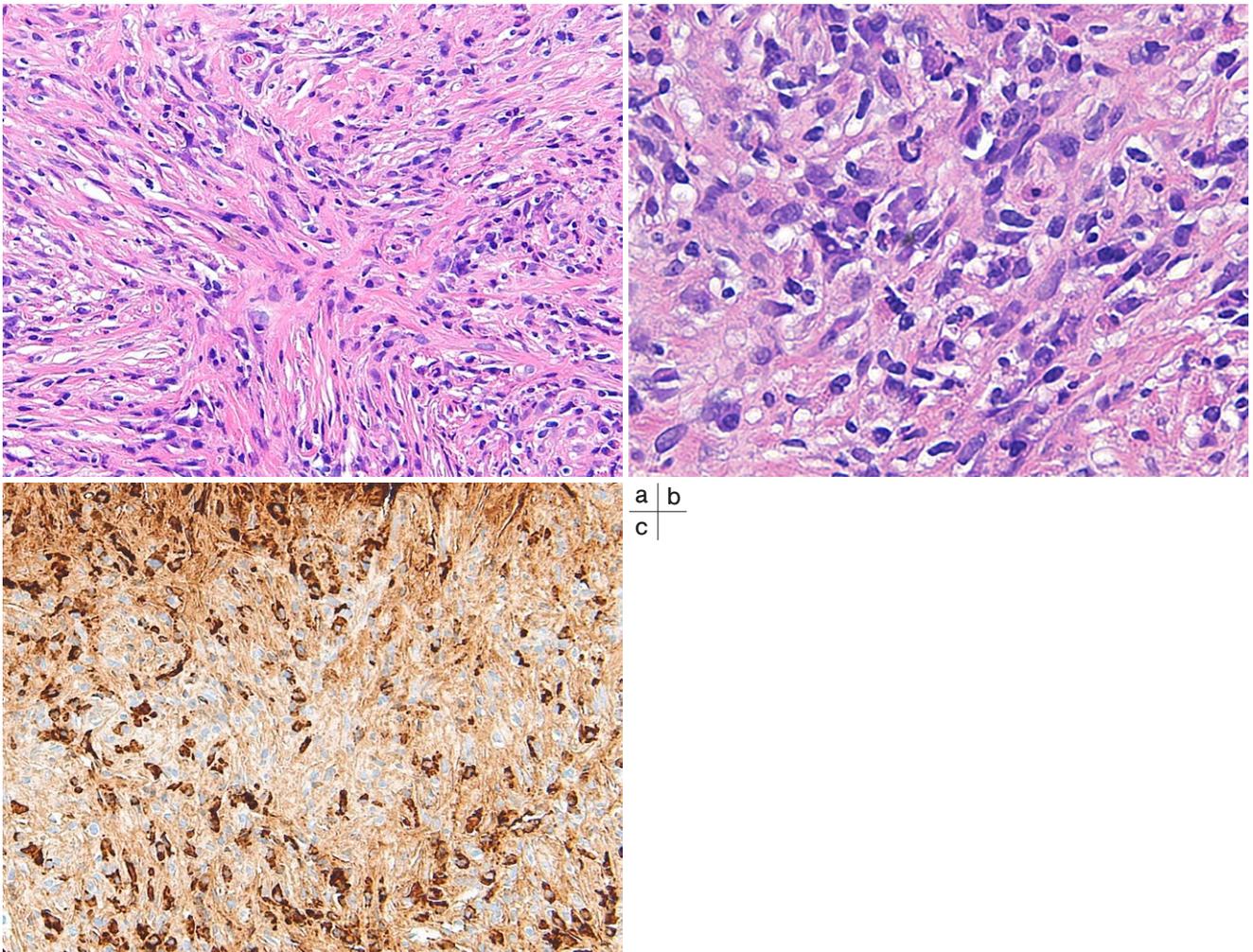
Magnetic resonance imaging shows an indistinct mass lesion in the transition zone. It exhibits homogeneous low signal intensity on T2W images, marked high signal intensity on high b-value diffusion-weighted imaging, and marked lowering of ADC (a-c). It shows early enhancement on dynamic contrast-enhanced (DCE) images (d).

フ値0.15より低値で前立腺癌としては非典型的であった。さらに、他臓器病変が組織学的にIgG4関連疾患と診断されていることから、臨床的にIgG4関連前立腺炎の可能性が高いと考えられた。しかし、前立腺MRIの所見からは前立腺癌やその他の悪性腫瘍を否定できなかったため、MR-US画像融合下針生検を施行した。

**MR-US画像融合下針生検時のUS所見：**前立腺体積は36ml，MRIの腫瘤に一致してhigh echoic lesion (HEL)を認めた。

**病理所見 (図3)：**上皮に異型は乏しく、悪性所見を認めなかった。著明な形質細胞浸潤，花筵状線維化がみられ，IgG4+/IgG+細胞比が90%を越えていた。

**経過2：**病理所見は2020改訂IgG4関連疾患包括診断基準の3項目を全て満たし，IgG4関連前立腺炎と診断した。当院膠原病・リウマチ・アレルギー科でステロイド治療を開始した。夜間頻尿，排尿困難については経過で改善を認めた。また，肝EOB-MRIおよび胸部CTが施



**図3 前立腺生検標本の病理所見**  
 a: HE染色，弱拡大  
 b: HE染色，強拡大  
 c: IgG4免疫染色，弱拡大  
 花筵状線維化，著明な形質細胞浸潤を認めた(a, b)。IgG4+/IgG+細胞比は90%を越えており，IgG4+形質細胞の数は高倍率視野あたり152個であった(c)。

**Fig.3 Pathological findings of the prostate biopsy specimen**  
 a: Hematoxylin and eosin staining, low-power magnification  
 b: Hematoxylin and eosin staining, high-power magnification  
 c: Immunomarker against IgG4, low-power magnification  
 Marked plasma cell infiltration and storiform fibrosis are seen (a, b). The IgG4+/IgG+ cell ratio is > 90%, and the number of IgG4+ plasma cells is 152 per high-power field (c).

行され、肝腫瘍や胸椎椎体周囲の軟部濃度腫瘍、肺病変の縮小を認めた。さらに血液検査ではIgG4の値は治療開始後4ヶ月で509 mg/dlまで低下しており、ステロイド投与量を漸減しながら経過観察中である。

## 考 察

IgG4関連疾患は、全身性の線維性炎症性疾患である<sup>1)</sup>。その病態は、臓器内のIgG4陽性形質細胞の限局性またはびまん性の浸潤である。

IgG4関連疾患の診断は、臨床所見、血清学的所見、画像的所見、病理組織学的所見などを総合して判断される。診断基準は複数存在し、日本では2020改訂IgG4関連疾患包括診断基準が発表されている一方、欧米からはIgG4関連疾患の国際分類基準(2019 ACR/EULAR IgG4-RD分類基準)が発表されている<sup>4)</sup>。本症例では日本の診断基準を元に診断を行ったが、後に欧米の診断基準と照らしてみてもIgG4関連疾患分類基準を満たした。

IgG4関連疾患では涙腺、唾液腺、膵臓に病変をきたす頻度が高く、前立腺病変の頻度はIgG4関連疾患症例の9.6%との報告がある<sup>2)</sup>。臨床症状としては一般的に排尿障害や閉塞症状などの下部尿路症状を呈する。そのため、臨床的に前立腺肥大との術前診断で切除後にIgG4関連疾患と診断された症例<sup>5)</sup>や、他臓器のIgG4関連疾患と診断されステロイド治療後に症状が軽快したことから臨床的にIgG4関連前立腺炎だったと判断された症例の報告もある<sup>6)</sup>。

前立腺病変のスクリーニングには前立腺特異抗原であるPSAが測定されるが、IgG4関連前立腺炎における血清PSA値は0.1~54.0 ng/mLと幅広いとの報告がある<sup>7)</sup>。一方で、前立腺導管の線維化によりPSA低値の傾向があるとの報告もある<sup>8)</sup>。したがって、IgG4関連前立腺炎とPSA値の相関に関しては一定の見解が得られていない。また、血清PSA値は前立腺自体の体積よりも前立腺癌の体積により相関しているとの報告がある<sup>9)</sup>。本症例では前立腺腫瘍のサイズが比較的大きいにも関わらず、PSAは軽度高値に留まっていたことから、IgG4関連前立腺炎としても矛盾しないと考えられた。しかしながら、IgG4関連疾患患者においては悪性腫瘍のリスクが上昇するとの報告<sup>10)</sup>や、針生検の結果IgG4関連前立腺炎と前立腺癌が合併していた症例の報告もある<sup>7)</sup>ため、悪性病変の可能性については常に考慮する必要がある。

IgG4関連前立腺炎の画像所見に関する報告は少ない<sup>11~13)</sup>。Ohらは、「前立腺肥大を伴うびまん性浸潤性病変」と「前立腺周囲腫瘍形成性病変」の2つの特徴があるとしている<sup>11)</sup>。文献的にはびまん性腫大のパターンの報

告が比較的多くみられる<sup>6,14,15)</sup>。モダリティ別の画像所見の報告では、CTでは前述同様に前立腺腫大、FDG-PETでは病変へのFDG集積亢進<sup>16,17)</sup>、MRIではT2強調画像で低信号を示し、造影増強効果、拡散制限を伴うことがあるとされる<sup>6,14,16)</sup>。前立腺周囲の腫瘍形成パターンについては、Leeらは前立腺の周囲に腫瘍を形成しMRIでPI-RADSカテゴリ5相当の所見を呈したIgG4関連前立腺炎の症例を報告している<sup>18)</sup>。

本症例は前立腺内に腫瘍を形成し、MRIではPI-RADSカテゴリ5相当であった。IgG4関連前立腺炎の一般的な画像的特徴には当てはまらなかったが、PSA値が軽度高値に留まっていたこと、IgG4関連前立腺炎で前立腺周囲にPI-RADSカテゴリ5相当の腫瘍形成を示す症例が存在したことを踏まえ、本症例もIgG4関連前立腺炎の可能性が高いと考えた。しかしながら、画像での前立腺癌除外は不可能であり、組織学的検索により悪性病変の有無を診断することが有用と考えられた。

IgG4関連疾患の治療については、前述の通り一般的にステロイドが治療の第一選択薬であり、奏効率は80%を超えるとされるが、症状が改善しない症例には外科的介入が必要となることもある<sup>18)</sup>。また、前立腺癌との鑑別で時に問題となる疾患に細菌性前立腺炎がある<sup>19)</sup>。本症例では細菌性前立腺炎も鑑別順位は低いが、鑑別の1つに挙がる。ステロイド治療を行う上で、積極的に組織診断をすることで細菌性前立腺炎を除外診断する意義はあると考えられる。

## 結 語

前立腺内に腫瘍形成をきたしたIgG4関連前立腺炎の症例を経験した。MRI上は前立腺癌と類似の所見を呈することがあること、また前立腺癌合併の報告も存在することから、組織学的に悪性病変を除外することが望ましいと考えられた。

## 利益相反

山田恵; Board member of the JRS, JCR, Kyoto College of Medical Science, and ISMRM; editorial board member for Radiology, MAGMA, KJR, JJR, The Neuroradiology Journal, and iMRI; consultant or advisory role for the AOSNHNR (secretary general) and Fujifilm Healthcare (consultant).

## 参考文献

- 1) Stone JH, Zen Y, Deshpande V. IgG4-related disease. *N Engl J Med*. 2012; 366(6): 539-51.

- 2) Yamada K, Yamamoto M, Saeki T, et al. New clues to the nature of immunoglobulin G4-related disease: a retrospective Japanese multicenter study of baseline clinical features of 334 cases. *Arthritis Res Ther.* 2017; 19(1): 262.
- 3) Umehara H, Okazaki K, Kawa S, et al. The 2020 revised comprehensive diagnostic (RCD) criteria for IgG4-RD. *Mod Rheumatol.* 2021; 31(3): 529-533.
- 4) Wallace ZS, Naden RP, Chari S, et al. The 2019 American College of Rheumatology/European League Against Rheumatism classification criteria for IgG4-related disease. *Ann Rheum Dis.* 2020; 79(1): 77-87.
- 5) Bourlon MT, Sánchez-Ávila M, Chablé-Montero F, Arceo-Olaiz R. IgG4-Related Autoimmune Prostatitis: Is It an Unusual or Underdiagnosed Manifestation of IgG4-Related Disease? *Case Rep Urol.* 2013; 2013: 295472.
- 6) Jazdarehee A, Ahrari A, Bowie D, et al. IgG4-related prostatitis manifesting as urinary obstruction in a 28-year-old male. *BMC Urol.* 2022; 22(1): 35.
- 7) Ezaki T, Akatsuka S, Sanjo T, Masuda T. Symptomatic IgG4-Related Prostatitis Simultaneously Diagnosed with Aggressive Prostate Cancer. *Case Rep Urol.* 2020; 2020: 6045328.
- 8) Yamamoto M, Takahashi H. IgG4-Related Disease in Organs Other than the Hepatobiliary-Pancreatic System. *Semin Liver Dis.* 2016; 36(3): 274-82.
- 9) Carvalhal GF, Daudi SN, Kan D, et al. Correlation between serum prostate-specific antigen and cancer volume in prostate glands of different sizes. *Urology.* 2010; 76(5): 1072-6.
- 10) Yu T, Wu Y, Liu J, Zhuang Y, Jin X, Wang L. The risk of malignancy in patients with IgG4-related disease: a systematic review and meta-analysis. *Arthritis Res Ther.* 2022; 24(1): 14.
- 11) Oh JW, Rha SE, Choi MH, Oh SN, Youn SY, Choi JI. Immunoglobulin G4-related Disease of the Genitourinary System: Spectrum of Imaging Findings and Clinical-Pathologic Features. *Radiographics.* 2020; 40(5): 1265-1283.
- 12) Aoki S, Morinaga S, Kawai N, et al. Immunoglobulin G4-related disease diagnosed by prostate biopsy: a case report. *J Med Case Rep.* 2022; 16(1): 345.
- 13) Liu H, Wallace ZS, Harvey L, et al. Prostate and pancreas involvement are linked in IgG4-related disease. *Semin Arthritis Rheum.* 2020; 50(6): 1245-1251
- 14) Li D, Kan Y, Fu F, et al. IgG4-related prostatitis progressed from localized IgG4-related lymphadenopathy. *Int J Clin Exp Pathol.* 2015; 8(9): 11747-52.
- 15) Buijs J, Maillette de Buy Wenniger L, van Leenders G, et al. Immunoglobulin G4-related prostatitis: a case-control study focusing on clinical and pathologic characteristics. *Urology.* 2014; 83(3): 521-526.
- 16) Ueki H, Nishina Y, Sumii K, et al. A case of IgG4-related disease diagnosed by prostate biopsy. *Acta Urol Jap.* 2019; 65(9): 381-384.
- 17) Nishimori I, Kohsaki T, Onishi S, et al. IgG4-related autoimmune prostatitis: two cases with or without autoimmune pancreatitis. *Intern Med.* 2007; 46(24): 1983-9.
- 18) Lee ZR, Lai YK, M L, Khor LY, Tay KJ, Law YM. Focal IgG4-related periprostatic "PI-RADS 5" pseudotumor mimicking prostatic adenocarcinoma. *Radiol Case Rep.* 2023; 18(6): 2158-2164.
- 19) Shakur A, Hames K, O'Shea A, Harisinghani MG. Prostatitis: imaging appearances and diagnostic considerations. *Clin Radiol.* 2021; 76(6): 416-426.

## A Case of Tumor-forming, IgG4-related Prostatitis

Kentaro Yuba<sup>1,3)</sup>, Natsuko Hayashi<sup>2,3)</sup>, Maki Kiba<sup>3)</sup>  
Naruhiko Kayukawa<sup>4)</sup>, Eiichi Konishi<sup>5)</sup>, Kei Yamada<sup>3)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Radiology, Kyoto Yamashiro General Medical Center

<sup>2)</sup>Department of Radiology, JCHO Kobe Central Hospital

<sup>3)</sup>Department of Radiology, Kyoto Prefectural University of Medicine

<sup>4)</sup>Department of Urology, Kyoto Kuramaguchi Medical Center

<sup>5)</sup>Department of Pathology, Kyoto Prefectural University of Medicine

### Abstract

A 50-year-old man presented with a two-month history of nocturia and urinary hesitancy. He was diagnosed with IgG4-related dacryoadenitis four months earlier. The laboratory workup showed slightly elevated PSA (4.59 ng/ml) and markedly elevated IgG4 (2060 mg/dl) levels. Magnetic resonance imaging (MRI) showed an indistinct mass lesion in the transition zone, and the Prostate Imaging Reporting and Data System (PI-RADS) score was 5 (very high probability of clinically significant cancer). An MRI/ultrasound (US) fusion biopsy was performed. Histological analysis showed IgG4-related prostatitis, with no malignant findings.

IgG4-related prostatitis is a rare benign inflammatory disease, which can mimic prostate carcinoma, both clinically and on MRI. Thus, a prostate lesion in a patient with IgG4-related disease needs to be histologically distinguished from prostate cancer.

### Keywords

IgG4-related disease (IgG4-RD), IgG4-related prostatitis, prostatic carcinoma  
prostate-specific antigen (PSA), Prostate Imaging Reporting and Data System (PI-RADS)

---

Received: July 15, 2024 Accepted: November 15, 2024

Corresponding author: Natsuko Hayashi

Department of Radiology, Kyoto Prefectural University of Medicine

465 Kaji-cho, Hirokoji-agaru, Kawaramachi-Dori, Kamigyo-ku, Kyoto, 602-8566, Japan

E-mail: hayashin@koto.kpu-m.ac.jp