

左側腹壁腹膜に原発した solitary fibrous tumor の 1 例

安江病院外科

若原 正幸 安江 幸洋 宮 喜一
安江 紀裕 安江 充里 久野 壽也

症例は 32 歳の女性。下痢を主訴として当院を受診した。注腸検査にて、下行結腸に壁外性の体位で変化する圧排像を認め、同部位に一致して可動性に富む硬い腫瘤を触知した。超音波検査で、左下腹部に約 60mm 大の充実性腫瘤を認め、CT にて腫瘤と腹壁との弱い結合を認めた。MRI では、T1 強調画像で高信号、T2 強調画像で低信号であった。可動性のある腹腔内腫瘍の診断にて開腹すると、左側腹壁の腹膜より垂れ下がった結節型腫瘤が認められ、表面は血管に富み、周囲の腹膜に増生血管を認めた。摘出標本は 60×55×40mm 大で、断面は灰白色の充実性腫瘍であった。病理検査では、紡錘形、楕円形の核を有する腫瘍細胞が、膠原線維形成を伴い、種々の密度で増殖し、一部に hemangiopericytoma 様の所見も認められた。免疫組織染色では、CD34、vimentin に陽性で、CD31、cytokeratin は陰性であったため、腹膜原発の solitary fibrous tumor と診断された。

はじめに

Solitary fibrous tumor (以下、SFT と略す) はまれな線維性腫瘍であり、多くは胸腔内に発生する。近年、さまざまな部位での発生が報告¹⁾され、その生物学的特徴や発生由来の観点から、特に注目されている。今回われわれは、左側腹壁の腹膜に発生した SFT の 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：32 歳、女性

主訴：下痢

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：1999 年 7 月より下痢傾向にあり、2000 年 6 月精査目的で当院を受診した。注腸検査にて下行結腸の壁外性圧排像を指摘され、同部位に一致して可動性腫瘤を触知したため、7 月 4 日に精査、治療目的にて入院した。

入院時現症：身長 170cm、体重 58kg、血圧 120/60mmHg、脈拍数 65/分、整、眼瞼結膜、眼球結膜に貧血・黄疸はなく、体表リンパ節の腫脹も認めなかった。左下腹部に鶏卵大の可動性を有する硬

い腫瘤を触知した。

入院時検査所見：血液一般および生化学的検査に異常はなく、腫瘍マーカーも正常値であった。

注腸検査所見：下行結腸下部に壁外性の圧排像が認められた。体位により圧排される部位が変化するため、可動性のある壁外性の腫瘍による圧排である可能性が示唆された (Fig. 1)。

腹部超音波所見：左下腹部に、60×50mm 大の境界明瞭、内部がやや不均一な低エコーを示す充実性腫瘤が認められた。

腹部 CT 検査所見：左下腹部に 60mm 大の充実性腫瘤が認められ、腹壁とまばらに繋がっている部位が描出された (Fig. 2)。

腹部 MRI 検査所見：腫瘤は境界明瞭で周囲への浸潤像は見られず、T1 強調画像で高信号、T2 強調画像では低信号を示した (Fig. 3a, b)。

以上の所見より、可動性のある腹腔内腫瘍の診断にて、2000 年 7 月 28 日手術を施行した。

手術所見：腹部正中切開にて開腹したところ、腹膜より垂れ下がった硬い結節型の腫瘍を認めた。表面は血管に富んでおり、周囲の腹膜にも増生血管を認めたが、外腹斜筋腱膜など周囲組織への浸潤は認められなかったため、周囲の腹膜のみ

Fig. 1 Barium enema examination showed deformity which was changeable in position associated with body movement due to compression by the tumor.



Fig. 2 Computed tomography demonstrated that the tumor loosely connected to the abdominal wall.



含めて腫瘍摘出術を施行した。

摘出標本所見：摘出した腫瘍は 60×55×40mm 大で、被膜に被われ、断面は灰白色で、比較的均一な充実性腫瘍であった (Fig. 4a, b)。

病理組織所見：紡錘形、橢円形、棍棒状の核を有する腫瘍細胞が、膠原線維形成を伴い種々の密度で増殖しており、核の配列は花むしる状や、柵状を示すなど多彩な構造であった (patternless ar-

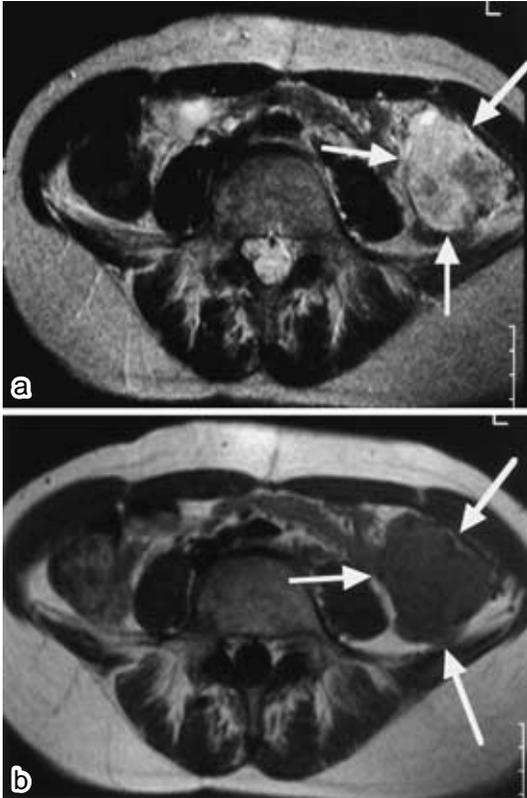
rangement) (Fig. 5)。核の異型度は軽度であり、mitosis は認められなかった。免疫組織化学染色では、CD34, vimentin に陽性であり、cytokeratin, CD31, α -smooth muscle actin は陰性であった (Fig. 6a, b)。以上の所見より、腹膜原発の solitary fibrous tumor と診断された。

術後経過：術後経過は良好で術後第 7 病日に退院した。術後 2 年経過した現在、再発の徴候は認めていない。

考 察

SFT は、当初は胸膜に発生するまれな線維性腫瘍として報告された腫瘍であり、localized fibrous mesothelioma, pleural fibroma, submesothelial fibroma, localized benign mesothelioma などいろいろな呼び方がされてきた¹⁾。SFT はこれまで中皮細胞由来と考えられてきたが²⁾、電顕的に microvilli など中皮腫の特徴である上皮細胞様の分化が認められないこと³⁾や、間葉系細胞由来を示す vimentin 染色が陽性で、中皮細胞由来を示す keratin, EMA 染色が陰性であることから、中皮下の間葉系細胞由来と認識されるようになった⁴⁾。

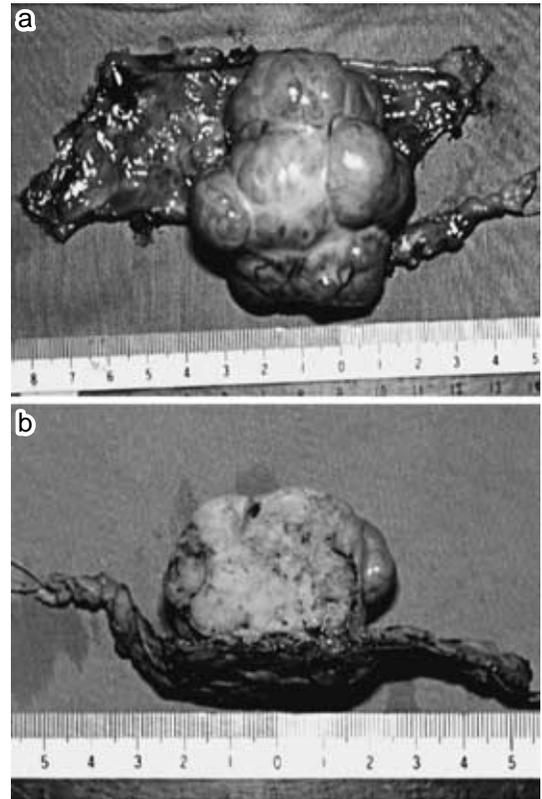
Fig. 3 (a) A T1-weighted magnetic resonance image (MRI) revealed a tumor with high intensity. (b) A T2-weighted MRI revealed a tumor with low intensity.



最近、胸膜以外に髄膜⁵⁾、眼窩⁶⁾、鼻・副鼻腔⁷⁾、甲状腺⁸⁾、肝⁹⁾、腎¹⁰⁾などの実質臓器、軟部組織¹¹⁾などから発生した報告が増加している。腹膜原発症例は極めてまれであり、検索しえた範囲 (Pub-Med 1980～2002) では、本邦報告例は自検例を含めて5例^{12)～15)}のみであった (Table 1)。

SFTの術前診断は、まれな疾患であるためきわめて困難である。画像所見でも本症に特徴的なものは明らかでないが、自験例のような可動性に富んだ腫瘤を触知し、CTにて腹壁とまばらな繋がりを認める所見は、本症の1つの形態を示す所見であると推察された。SFTの確定診断は病理組織検査により行われるが、その組織所見は多彩である。類円形や紡錘形の腫瘍細胞が不規則に増殖し、細胞間には膠原線維の形成が認められる。さまざま

Fig. 4 (a) The encapsulated tumor was 60 × 55 × 40 mm in size with knobby surface. (b) Cut section was gray-white color and had a whorled pattern.



な細胞密度の部分混在しており、腫瘍細胞は storiform pattern、束状配列、核の柵状配列を示したり、時に herringbone pattern をみることがある。また、小血管が豊富で、hemangiopericytoma 様構造がみられることも特徴的所見である¹⁾。免疫組織化学検査では、血管内皮細胞に発現する CD34 や間葉系細胞に発現する vimentin に陽性であり、他の軟部腫瘍との鑑別に有用である¹¹⁾。また、muscle type actin 陽性例も一部にみられるが、cytokeratin、EMA、S-100 蛋白には陰性である。電顕的には、腫瘍細胞は線維芽細胞あるいは筋線維芽細胞の特徴を示している³⁾。自験例においても CD34、vimentin 染色陽性であり、cytokeratin 染色陰性であった。SFTは一般的に腫瘍細胞に多形性はみられず分裂像も少ないが、なかには異形性を示し、細胞密度が高く、多数の分裂像

や壊死を認める症例が存在する．Briselliら⁴⁾はそのような悪性例は胸膜の場合13%に存在すると報告している．しかし、これらの組織所見が必ずしも臨床所見と一致しないことを、多数の報告者¹⁶⁾が指摘している．

胸膜以外に発生したSFTの大部分は予後良好といわれているが、再発および転移をきたした症例も報告されている¹⁷⁾．腹膜原発の場合、症状が発現しにくいいため発見時腫瘍は大きく、なかには腫瘍内に悪性化した部位を認めるものもあった．SFTは未分化な細胞を起源としているため、発見が遅れると腫瘍自体の性質が変化しやすいものであると推察された．また、良性と診断された症例でも再発することがあり¹⁸⁾、さらに再発巣では原

発巣より腫瘍の悪性度が増大する報告¹⁹⁾もみられる．自験例は懸垂性腫瘍であり周囲組織への浸潤

Fig. 5 “Pattern less” arrangement of spindle cells in a collagenous background (HE stains, $\times 100$)

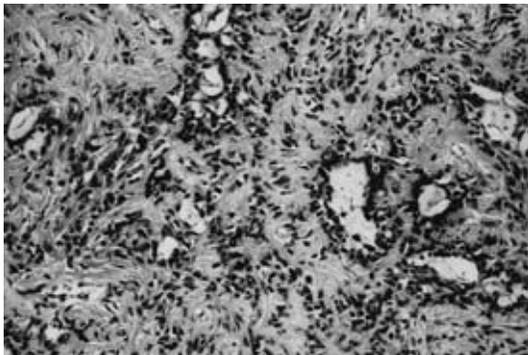


Fig. 6 (a) All the tumor cells, as well as the endothelial cells were strongly reactive for CD34 immunohistochemical staining ($\times 100$). (b) Tumor cells were positive for vimentin ($\times 100$)

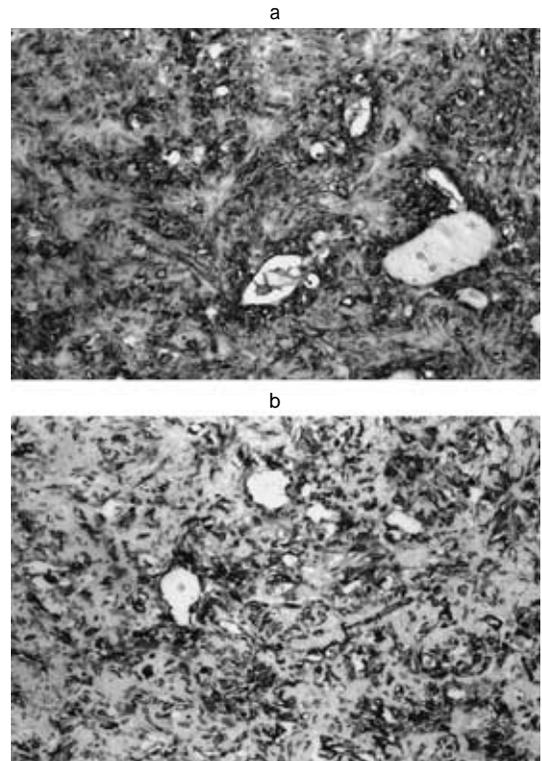


Table 1 Reported cases of solitary fibrous tumors of the peritoneum in Japan

| author | year | age/sex | location | chief complaints | size | immunohistochemical | follow-up |
|---------------------------|------|----------|---------------------------------|---------------------------------|-------------------|--|------------------|
| ① Mikami ¹²⁾ | 1994 | 78/man | minor pelvic cavity | distension of the lower abdomen | 18 × 17 × 14cm | vimentin(+) PCNA(+) cytokeratin(+) | NED 12 months |
| ② Fukunaga ¹³⁾ | 1996 | 68/woman | mesocolon of the sigmoide colon | lower abdominal mass | 20 × 18 × 15cm | vimentin(+) CD34(+) cytokeratin(+) | DOD 2.5 years |
| ③ Adachi ¹⁴⁾ | 1999 | 66/man | in front of the pancreas | asymptomatic | 5.0 × 5.5cm | unknown | NED 5 years |
| ④ Kubota ¹⁵⁾ | 2000 | 68/man | prevesical space | frequency of urination | 12 × 10cm | CD34(+) vimentin(+) | NED 2 years |
| ⑤ present case | 2002 | 32/woman | left lower abdominal wall | diarrhea | 6.5 × 6.0 × 6.0cm | CD34(+) vimentin(+) cytokeratin(-) CD3(-) α -smooth muscle actin(-) | NED 20 months |

NED : no evidence of disease DOD : died of disease

はみられず，組織像も良性像を示したため，再発の可能性は低いと推察されるが，このようなSFTの治療には遺残腫瘍を残さない完全な腫瘍摘出術と注意深い経過観察が重要であると考えられた。

文 献

- 1) 廣瀬隆則：軟部の線維性腫瘍のトピックス．病理と臨 17：923 26, 1999
- 2) Stout AP, Murray MR：Localized pleural mesothelioma. Investigation of its characteristics and histogenesis by the method of tissue culture. Arch Pathol 34：951 964, 1942
- 3) 岡田真也，海老原善郎，工藤玄恵ほか：Solitary fibrous tumor of the pleura，その組織発生と生物学的性格について．肺癌 38：825 835, 1998
- 4) Briselli M, Mark EJ, Dickersin GR：Solitary fibrous tumors of the pleura：Eight new cases and review of 360 cases in the literature. Cancer 47：2678 2689, 1981
- 5) Carneiro SS, Scheithauer BW, Nascimento AG et al：Solitary fibrous tumor of the meninges：A lesion distinct from fibrous meningioma. A clinicopathologic and immunohistochemical study. Am J Clin Pathol 106：217 224, 1996
- 6) Dorfman DM, To K, Dickersin GR et al：Solitary fibrous tumor of the orbit. Am J Surg Pathol 18：281 287, 1994
- 7) Zukerberg LR, Rosenberg AE, Randolph G et al：Solitary fibrous tumor of the nasal cavity and paranasal sinuses. Am J Surg Pathol 15：126 130, 1991
- 8) Cameselle-Teijeiro J, Verela-Duran J, Fonseca E et al：Solitary fibrous tumor of the thyroid. Am J Clin Pathol 101：535 538, 1994
- 9) Barnoud R, Arvieux C, Pasquier D et al：Solitary fibrous tumour of the liver with CD34 expression. Histopathology 28：551 554, 1996
- 10) Fukunaga M, Nikaidou T：Solitary fibrous tumour of the renal peripelvis. Histopathology 30：451 456, 1997
- 11) Suster S, Nascimento AG, Miettinen M et al：Solitary fibrous tumors of soft tissue. A clinicopathological and immunohistochemical study of 12 cases. Am J Surg Pathol 19：1257 1266, 1995
- 12) Mikami Y, Manabe T, Moriya T et al：Malignant localized fibrous tumor of the peritoneum arising in its benign counterpart. Jpn J Clin Oncol 24：331 335, 1994
- 13) Fukunaga M, Naganuma H, Ushigome S et al：Malignant fibrous tumor of the peritoneum. Histopathology 28：463 466, 1996
- 14) Adachi T, Sugiyama Y, Saji S：Solitary fibrous benign mesothelioma of the peritoneum：Report of a case. Surg Today 29：915 918, 1999
- 15) Kubota Y, Kawai N, Tozawa K et al：Solitary fibrous tumor of the peritoneum found in the prevesical space. Urol Int 65：53 56, 2000
- 16) Morimitsu Y, Nakajima M, Hisaoka M et al：Extrapleural solitary fibrous tumor：clinicopathologic study of 17 cases and molecular analysis of the p53 pathway. APMIS 108：617 625, 2000
- 17) Vallat-Decouvelaere AV, Dry SM, Fletcher CD：Atypical and malignant solitary fibrous tumors in extrathoracic locations. Evidence of their comparability to intra-thoracic tumors. Am J Surg Pathol 22：1501 1511, 1998
- 18) 伴場次郎，友安 浩，谷村繁雄ほか：限局型胸膜中皮腫6手術症例の検討．日胸外会誌 31：1594 1600, 1983
- 19) 菅 理晴，金子公一，森田理一郎ほか：再発巣で悪性化傾向を認めた限局性線維性胸膜中皮腫の1例．肺癌 37：525 529, 1997

A Case of Solitary Fibrous Tumor of the Peritoneum Found in the Left Lower Abdomen

Masayuki Wakahara, Sachihiro Yasue, Kiichi Miya, Toshihiro Yasue,
Mitsuri Yasue and Toshiya Kuno
Department of Surgery, Yasue Hospital

We report a case of solitary fibrous tumor of the peritoneum. A 32-year-old woman admitted for diarrhea was found in physical examination to have a hard movable mass palpable in the left lower abdomen. Barium enema showed a deformity which was changeable in position associated with body movement due to compression by the tumor. Ultrasonography showed a 60mm tumor in the left lower abdomen, and computed tomography showed the tumor to be loosely connected to the abdominal wall. Magnetic resonance imaging showed a well-defined tumor of high intensity in T1-weighted imaging and low density in T2-weighted imaging. A laparotomy was conducted based on a diagnosis of a pedunculated tumor arising in the abdominal wall. The tumor rose from the peritoneum of the left abdominal wall with a pedicle, and its surface had abundant vasculature. The resected specimen was a 60 × 55 × 40mm encapsulated tumor with a cross-section of grayish white with a whorled pattern. Microscopically, the tumor consisted of an admixture of round or oval and spindle cells aggregating in nests and sheets surrounded by abundant patternless collagen. A hemangiopericytom-like appearance was also seen in some areas. Immunohistochemically, the specimen tested positive for CD34 and vimentin but negative for CD31 and cytokeratin. Based on these findings, the patient was diagnosed as having a solitary fibrous tumor of the peritoneum.

Key words : solitary fibrous tumor, peritoneum, CD34

[Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 283 - 288, 2003]

Reprint requests : Masayuki Wakahara Department of Surgery, Gifuchuuou Hospital
3-25 Kawabe, Gifu-shi, 501-1198 JAPAN
