

膀胱より発生した Solitary fibrous tumor の 1 例

清家 健作¹, 亀山 紘司¹, 加藤 卓¹, 土屋 朋大¹
 安田 満¹, 横井 繁明¹, 仲野 正博¹, 林 秀治²
 出口 隆¹, 廣瀬 善信³

¹岐阜大学医学部附属病院泌尿器科, ²郡上市民病院泌尿器科

³岐阜大学医学部附属病院病理部

SOLITARY FIBROUS TUMOR OF THE URINARY BLADDER : A CASE REPORT

Kensaku SEIKE¹, Koji KAMEYAMA¹, Taku KATO¹, Tomohiro TSUCHIYA¹,
 Mitsuru YASUDA¹, Shigeaki YOKOI¹, Masahiro NAKANO¹, Syuji HAYASHI²,
 Takashi DEGUCHI¹ and Yoshinobu HIROSE³

¹The Department of Urology, Gifu Medical University

²The Department of Urology, Gujo City Hospital

³The Department of Pathology, Gifu Medical University

A 41-year-old woman with an incidental tumor of the urinary bladder was referred to our hospital. Computed tomography and magnetic resonance imaging showed a tumor in the urinary bladder wall with expansive growth. Under the suspicion of leiomyoma, we performed transurethral resection of the tumor. Pathological examination of tumor specimens revealed patternless arrangements of spindle cells. Immunohistochemical analysis revealed tumor cells positive for CD34 and bcl-2. The final diagnosis was a solitary fibrous tumor.

(Hinyokika Kyo 58 : 105-108, 2012)

Key words : Solitary fibrous tumor, Urinary bladder tumor

緒 言

Solitary fibrous tumor (以下 SFT と略す) は 1931 年に Klemperer と Rabin¹⁾ らによりはじめて報告された線維性間葉系腫瘍である。当初は胸膜に発生すると考えられていたが、近年胸膜外発生例の報告も散見されるようになってきた。今回われわれは膀胱に発生した SFT の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 41 歳, 女性

既往歴 : 子宮外妊娠にて卵管切除術

家族歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 2010 年 7 月に近医婦人科で子宮がん検診を受けた際、経膈超音波検査にて膀胱内に腫瘍を指摘され、同院泌尿器科を受診した。膀胱鏡検査、MRI にて膀胱頸部に 5 cm 大の腫瘍を認めたため針生検を施行された。病理検査で診断の確定は得られなかったが、悪性所見は認めなかった。しかしながら尿線の途絶、残尿感などの排尿障害も認めたため、加療目的で 8 月に当科紹介初診となった。

初診時現症 : 身長 162 cm, 体重 53.0 kg, 体温

36.9°C, 血圧 129/82 mmHg, 脈拍 67/分 (整)。視診、触診上腹部は平坦、軟で明らかな腫瘍は触知せず、圧痛も認めなかった。その他、鼠径部リンパ節などの腫瘍も触知しなかった。

血液、尿検査所見 : 末梢血液検査、血液生化学検査にて特に異常は認めなかった。検尿沈渣では血尿や膿尿は認めず、尿細胞診も陰性であった。

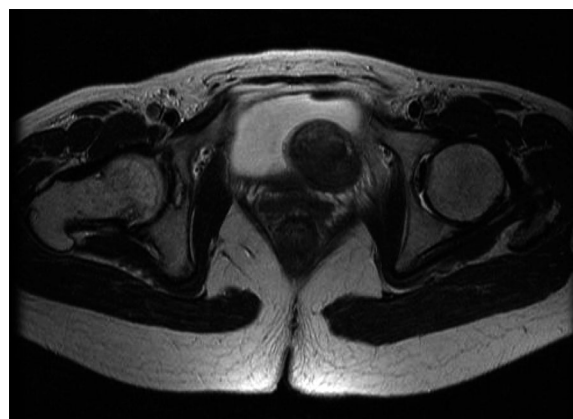


Fig. 1. Magnetic resonance imaging T2-weighted imaging showed a mass 5 cm in diameter on the left side posterior wall of the bladder.

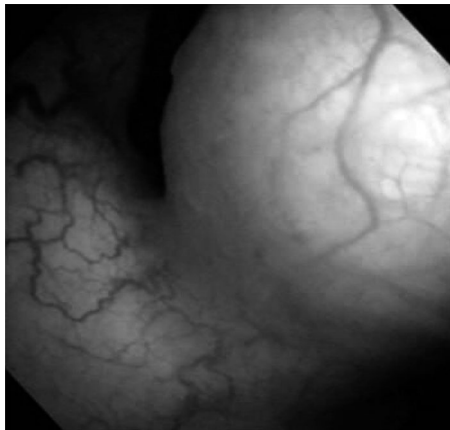


Fig. 2. Cystoscopy revealed a non-papillary tumor located left side of the urinary bladder neck.

画像診断：経膈超音波検査にて膀胱左側に hypoechoic な腫瘍を認め、内部エコーは均一であった。CT では膀胱頸部左側に造影効果のある 52×34 mm 大の腫瘍を認め、MRI では T1 強調画像で横紋筋と同程度、T2 強調画像で低信号を呈し、内部は比較的均一で被膜様の構造を有していた (Fig. 1)。膀胱鏡検査で、腫瘍は膀胱頸部左側に粘膜下から隆起するように存在していた (Fig. 2)。

治療経過：前医での腫瘍生検病理検査結果より良性膀胱粘膜下腫瘍として、平滑筋腫や paraganglioma など考えた。症状や画像検査より後者は否定的と判断したが、質的診断には至らず、残尿感や尿線途絶など

の排尿症状もあったため、治療と拡大生検を目的として9月に経尿道的膀胱腫瘍切除術を行った。手術はオリンパス社製 HF サージェリーシステム (TURis) を使用し、まず隆起した腫瘍茎部の膀胱粘膜を全周性に切開した。その後、切除ループにて腫瘍を膀胱壁から剥離するように圧排すると、膀胱筋層と腫瘍に癒着は認めず、この間の層で容易に剥離できた。このため、腫瘍は膀胱筋層から核出するように膀胱内へ遊離し、その後 TURis にて遊離した腫瘍を細かく切除して摘出した。手術時間は147分で出血はほとんど認めなかった。病理組織検査にて腫瘍は紡錘形の核を持つ細

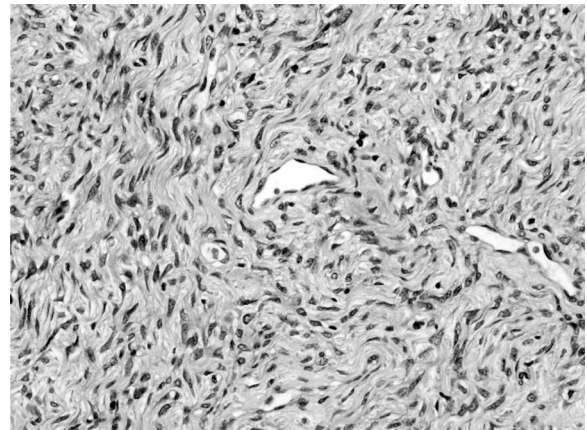


Fig. 3. Histopathological finding of the tumor showed patternless arrangements of spindle cells.

Table 1. Reported 15 cases of SFT originating in urinary bladder

Authors	Age	Gender	Presentation	Size (cm)	Procedure	Follow-up (month)
Bainbridge TC, et al. (1997)	50	Female	Incidental US finding	$5.2 \times 4.4 \times 4.3$	Transurethral resection	18
Bainbridge TC, et al. (1997)	42	Male	Pelvic pressure	$17.0 \times 13.5 \times 15.5$	Wide excision	3
Westra WH, et al. (2000)	67	Male	Incidental discovered mass during TURP	4	Cystoprostatectomy	9
Westra WH, et al. (2000)	67	Male	Incidental MRI finding	—	Transurethral resection	1
Corti B, et al. (2001)	50	Male	Pelvic pain, weight gain, hypoglycemia	6.5	Total cystectomy	18
Kim SH, et al. (2004)	56	Male	Urinary frequency, residual urine	$12.0 \times 8.0 \times 6.0$	Wide excision	12
Lite KR, et al. (2004)	60	Male	Incidental MRI finding	3.2	Radical prostatectomy	11
Julia H, et al. (2004)	24	Female	Gross hematuria, lower abdominal pain	8.5×7.8	Transurethral resection	24
Wang XM, et al. (2006)	23	Male	Incidental cystoscopic finding, gross hematuria	$6.0 \times 5.0 \times 2.0$	Transurethral resection	—
Tzelepi V, et al. (2007)	59	Female	Gross hematuria	$8.5 \times 6.5 \times 4.5$	Radical cystectomy	77
Nakayama Y, et al. (2008)	38	Female	Urinary frequency	$15 \times 9 \times 8$	Tumor resection	—
Wang T, et al (2010)	50	Male	Gross hematuria, incidental CT finding	$3 \times 5 \times 8$	Wide excision	9
Martin LL, et al. (2010)	59	Male	Urinary frequency, sense of residual urine	4×3	Tumor resection	24
Imajo C, et al. (2010)	59	Male	Voiding difficulty	13	Partial cystectomy	19
Our case	41	Female	Incidental US finding, sense of residual urine	5.2×3.4	Transurethral resection	3

胞が不規則に配列する patternless pattern を呈し, 細胞間には膠原線維を伴っていた (Fig. 3). 免疫染色にて CD34, bcl-2 に陽性を示し SFT と診断したが, 核の分裂像や核異型, 壊死など悪性を疑う所見は認めなかった. 手術後は残尿感や尿線の途絶などの症状は改善し, 術後3カ月が経過した時点で再発, 転移は認めない.

考 察

SFT は1931年に Klemperer, Rabin ら¹⁾によりはじめて報告されたが, 当初は限局性線維性胸膜中皮腫とされていた. その後, 免疫染色で CD34 が陽性を呈することが報告され, 胸膜外の発生の報告も増えてきた. このため, 現在では胸膜外にも発生する線維性間葉系腫瘍とされ, SFT と称されるようになった.

その発生頻度はきわめて稀で, England ら²⁾の報告では10万人に2.8人とされている. 胸膜発生と胸膜外発生の比率は11:5とされおり, 長谷川ら³⁾は胸膜外発生の24例を集計している. これによると後腹膜や骨盤腔が10例 (42%) と最も多く報告されているが, 四肢や体幹, 眼窩, 腎, 子宮頸部にも認められており発生部位は様々である. 泌尿生殖器発生例に限ると2005年に敦川ら⁴⁾が1959年から2003年までの62例の報告を集計しており, 発生部位は後腹膜腔26例, 腎臓10例, 前立腺8例, 膀胱7例, 精索4例, 副腎3例, 膀胱周囲組織3例, 精囊腺2例と報告している. この報告では膀胱発生例に関して詳細な記載はないが, 今回われわれが調べた限り1997年以降に自験例を含めて15例の膀胱発生例が報告されていた (Table 1). 15例の平均年齢は49.7歳 (23~67歳) で, 性差は男性10例, 女性5例と男性に多く報告されていた. 大半の症例が無症状のまま偶発的に画像検査で指摘されるため, 比較的大きくなってから発見される例も少なくない. このため, 大きさが10 cm 以上の症例も認められ, 腫瘍触知や痛みなど腫瘍増大に伴う症状も報告されている. 部位によっては自験例同様に排尿困難や頻尿などの排尿症状で発症する症例も認められた⁵⁾. また, SFT に特徴的な症状として, 約5%の症例で insulin-like growth factor による低血糖発作を認めるとされているが^{6,7)}, 自験例で血糖の異常は認められなかった.

診断において特徴的な画像所見はなく, 診断の確定には病理組織学的検査が必要であるため, 術前診断は困難とされている. しかしながら, Lu ら⁸⁾は針生検と免疫染色を組み合わせることで安全に術前診断が可能であったと報告しており, 泌尿生殖器で間葉系の腫瘍を疑った際は SFT も念頭において精査を勧めることが重要と考えられる. 病理所見では線維芽細胞様の紡錘形細胞が膠原線維間を不規則に配列する patternless pattern と, さまざまの程度に拡張した細血管の周

囲を腫瘍細胞が取り巻くように配列する hemangiopericytoma 様構造が特徴とされる^{9,10)}. 免疫染色で CD34, bcl-2 が陽性を示すことが多いとされ^{2,11)}, これらの病理所見は自験例でも認められた.

本疾患の多くは予後良好であるとされるが, 悪性症例も存在し, 完全切除と判断した症例や長期間再発なく経過した症例での再発の報告もある¹²⁾. その悪性診断の基準として, England ら³⁾は病理組織で, ①細胞密度が高いこと, ②核異型が強いこと, ③出血や壊死を伴うこと, ④強拡大での10視野中4個以上の核分裂像を認めることを挙げているが, 本症例はではこれらの所見は認めなかった.

結 語

膀胱に発生した solitary fibrous tumor の1例を報告した. 本疾患は泌尿生殖器領域にも発生しえる間葉系腫瘍であり, 悪性症例も存在することを認識しておく必要があると考える.

文 献

- 1) Klemperer P and Rabin CB: Primary neoplasm of the pleura: a report of five cases. *Arch Pathol Lab Med* **11**: 385-412, 1931
- 2) England DM, Hochholzer L and McCarthy MJ: Localized benign and malignant fibrous tumors of the pleura: a clinicopathologic review of 223 cases. *Am J Surg Pathol* **13**: 640-658, 1989
- 3) Hasegawa T, Matsuno Y, Shimoda T, et al.: Frequent expression of bcl-2 protein in solitary fibrous tumors. *Jpn J Clin Oncol* **28**: 86-91, 1998
- 4) 敦川浩之, 小村秀樹, 平田輝夫: 低血糖を併発した Perivesical solitary fibrous tumor の1例. *日泌尿会誌* **96**: 709-713, 2005
- 5) Nakatani T, Tamada S, Imai Y, et al.: Solitary fibrous tumor in the retroperitoneum: a case with infiltrative growth. *Hinyukika Kiyo* **48**: 637-641, 2002
- 6) 河嶋厚成, 氏家 剛, 任 幹夫, ほか: 低血糖発作にて発見された後腹膜 Solitary fibrous tumor の1例. *泌尿紀要* **55**: 395-399, 2009
- 7) Fukusawa Y, Takada A, Tateno M, et al.: Solitary fibrous tumor of the pleura causing recurrent hypoglycemia by secretion of insulin-like growth factor II. *Pathol Int* **48**: 47, 1998
- 8) Lu C, Ji Y, Guo W, et al.: Solitary fibrous tumor of the pleura: an analysis of 13 cases. *World J Surg* **32**: 1663-1668, 2008
- 9) 川井敏郎, 藤井丈士, 久力 権, ほか: Solitary fibrous tumor について. *日胸臨* **55**: 968-976, 1997
- 10) Yamada H, Tsuzuki T, Yokoi K, et al.: Solitary fibrous tumor of the kidney originating from the renal capsule and fed by the renal capsular artery. *Pathol Int* **54**: 914-917, 2004

- 11) Van de Rijn M, Lombard CM and Rouse RV: Expression of CD34 by solitary fibrous tumors of the pleura, mediastinum, and lung. *Am J Surg Pathol* **18**: 814-820, 1994
- 12) Hasegawa T, Matsuno Y, Shimoda T, et al.: Extra-thoracic solitary fibrous tumor: their histological variability and potentially aggressive behavior. *Hum Pathol* **30**: 1464-1473, 1999
- (Received on August 16, 2011)
(Accepted on October 25, 2011)