

MRI で偶然発見された膀胱 Solitary fibrous tumor の 1 例

倉本 朋未¹, 井口 孝司¹, 射場 昭典²¹新宮市立医療センター泌尿器科, ²りんくう総合医療センター泌尿器科SOLITARY FIBROUS TUMOR OF THE URINARY BLADDER
WHICH WAS INCIDENTALLY FOUND BY MRI: A CASE REPORTTomomi KURAMOTO¹, Takashi IGUCHI¹ and Akinori IBA²¹The Department of Urology, Shingu Municipal Medical Center²The Department of Urology, Rinku General Medical Center

A 72-year-old female complained of pain in the left hip and consulted a local orthopedic surgeon. Magnetic resonance imaging (MRI) was conducted for the left hip. MRI revealed a subchondral insufficiency fracture of the left femoral head and pointed out a bladder tumor 65 mm in size. Hence, the patient was referred to our department for further examination. Cystoscopy revealed a smooth surface tumor protruding from the left side of the bladder neck. Therefore, transurethral resection of bladder tumor (TURBT) was performed. Pathological finding showed spindle-shaped cells surrounded by collagen fibers. Immunostaining demonstrated that CD34 and Bcl-2 were positive. The final diagnosis was a solitary fibrous tumor (SFT). A TURBT was performed 3 years after initial TURBT for recurrence of a 25 mm tumor in the bladder trigone. The pathological diagnosis was SFT. Since the last surgery, which was performed 30 months ago, no recurrence has been observed.

(Hinyokika Kiyo 67 : 385-389, 2021 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_67_8_385)

Key words : Solitary fibrous tumor, Urinary bladder tumor

緒 言

Solitary fibrous tumor (SFT) は1931年に Klemperer と Rabin らによりはじめて報告された線維性間葉系腫瘍である¹⁾。SFT は胸膜発生が多く、膀胱に発生するものは稀である。今回われわれは膀胱に発生した SFT を経験したので報告する。

症 例

患者 : 72歳, 女性。

主 訴 : 自覚症状なし。

既往歴 : 特記すべきことなし。

現病歴 : 2015年4月, 左股関節痛で近医整形外科を受診し MRI で左大腿骨頭軟骨下脆弱骨折を認めた。その際膀胱内に T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で様々な信号が不均一に混在する最大径 65 mm 大の腫瘍性病変を指摘され当科紹介受診となった。

入院時検査所見 : 血液一般 : WBC 6,200/ μ l, RBC 397 \times 10⁴/ μ l, Hb 12.7 g/dl, Ht 37.3%, PLT 20.8 \times 10⁴/ μ l。血液生化学 : Na 146 mEq/l, K 3.3 mEq/l, Cl 106 mEq/l, BUN 14.5 mg/dl, Cr 0.60 mg/dl, AST 33 IU/l, ALT 31 IU/l, LDH 234 IU/l, CRP 0.35 mg/dl, CEA 6.2 ng/ml, CA19-9 5.3 U/ml, NSE 13.7 ng/ml, CA125 7.0 U/ml, SCC 1.1 ng/ml, 可溶性 IL-2 レセプター 310 U/ml。尿検査 ; 蛋白 (-), 糖 (-), 尿

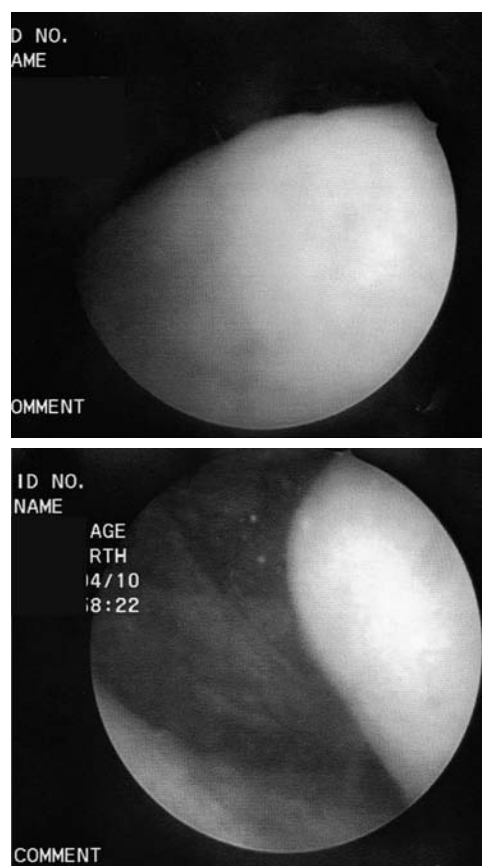


Fig. 1. Cystoscopic findings show a smooth surface tumor protruding from the left side of the bladder neck.

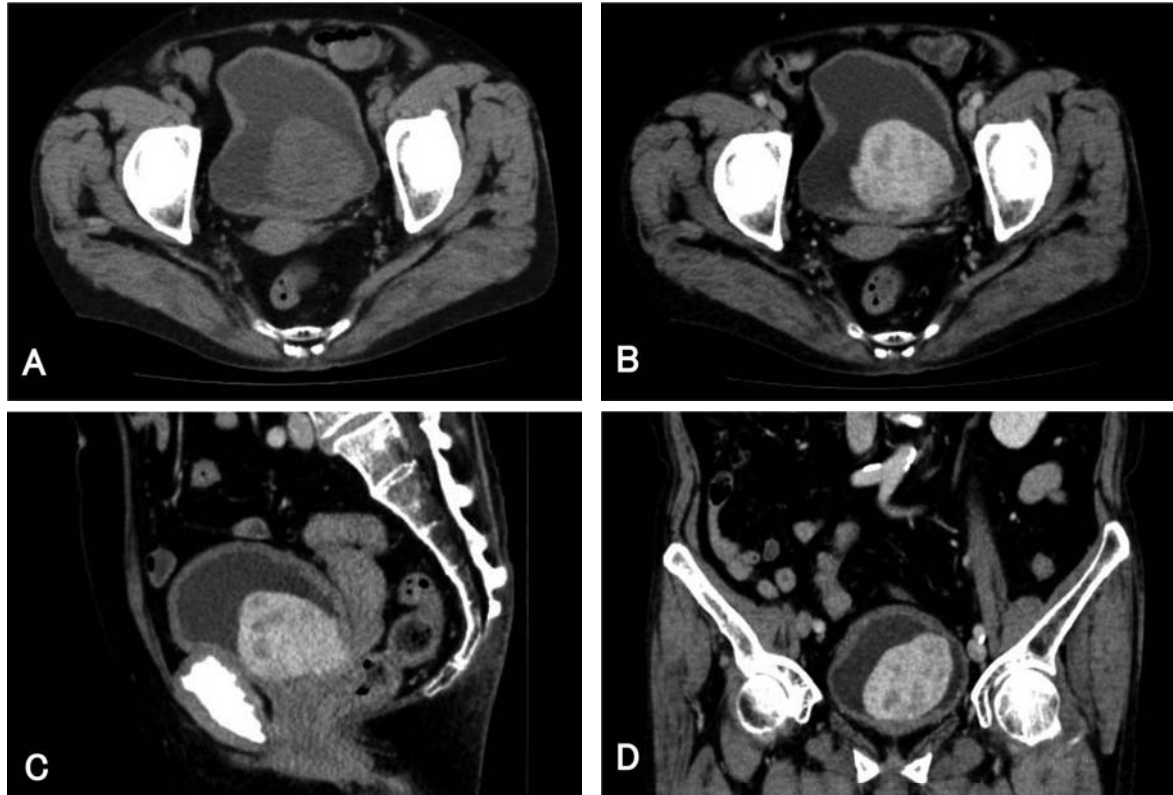


Fig. 2. Computed tomography (CT) reveals a 65 mm-sized tumor with a contrasting effect protruding from the bladder neck. No distant metastasis is observed (A: plain CT. B-D: contrast-enhanced CT).

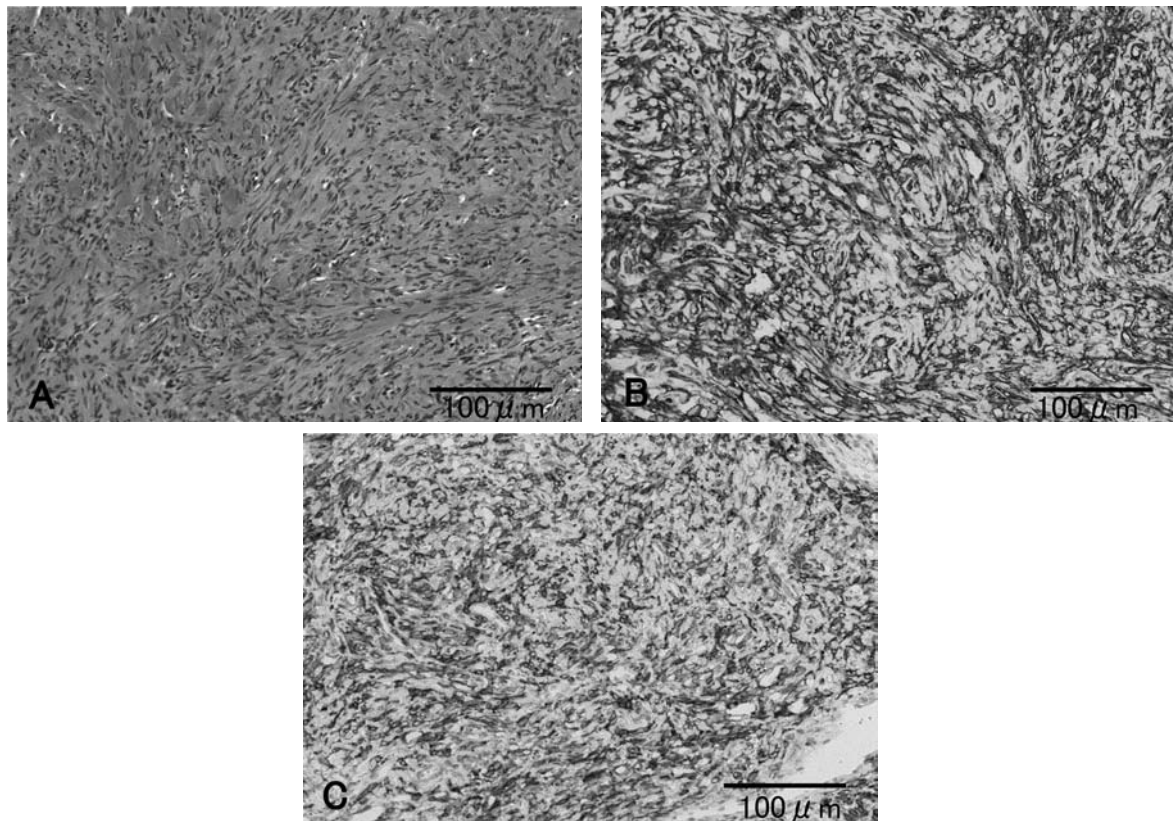


Fig. 3. Pathological diagnosis: A. Hematoxylin and Eosin (HE) staining shows spindle-shaped cells densely arranged in the subepithelial stroma of the bladder mucosa. The spindle cells proliferate irregularly with collagen fibers and areas with increased blood vessels are also observed. B, C. Immunostaining indicated CD34 and Bcl-2 are positive (B: CD34, C: Bcl-2).

潜血(-), RBC 1~4/HPF, WBC 50~99/HPF, N/Cが高い細胞を認めた. 尿細胞診は陰性(class II)であった.

画像診断: 初診時膀胱鏡所見では膀胱頸部左側から膀胱内に突出する表面平滑な腫瘍を認めた(Fig. 1). CT検査では膀胱頸部から突出する65 mm大の腫瘍を認めた. 腫瘍表面は比較的平滑で, 不均一な造影効果を認めた. 遠隔転移は認めなかった(Fig. 2).

治療経過: 確定診断のために経尿道的膀胱腫瘍切除術(TURBT)を施行した. 腫瘍は三角部あたりから発生しており表面は平滑であった.

病理診断: HE染色では膀胱粘膜上皮下間質に密に配列する紡錘形細胞を認めた. 膠原線維を伴い不規則に増殖しており, 血管の増加した部分も見られた. 筋層への浸潤は認めなかった. 細胞異型・核分裂像は乏しく, MIB-1陽性細胞は1%であり悪性所見は認めなかった. 免疫染色ではS100陰性, Desmin陰性, CD34陽性, Bcl-2陽性でありSolitary fibrous tumorと診断した(Fig. 3).

術後経過: 術後3カ月ごとの膀胱鏡検査, 3~6カ月ごとのCTでフォローしていた. 2018年5月排尿時尿散乱の訴えあり, 膀胱鏡検査で三角部に非乳頭型腫瘍を確認した. CT, MRIで膀胱三角部に約25 mmの腫瘍を認めた. MRI画像ではT2強調像での不均

一信号, T1強調像での低信号を認め(Fig. 4), SFTの再発と判断した. 腫瘍サイズが25 mmと小さく, 三角部の腫瘍でありTURBTで根治可能と判断しTURBTを選択した. 病理組織診断は前回と同様のSFTでありMIB-1 labeling indexは2%であった. 再発後のフォローは, 2年間は3カ月ごとの膀胱鏡, 半年ごとのCT検査, 3年目は半年ごとの膀胱鏡, 1年ごとのCT検査, 4年目からは1年ごとの膀胱鏡, CT検査を予定している. 再発から30カ月現在再発, 転移は認めていない.

考 察

Solitary fibrous tumor (SFT)は間葉系腫瘍の1つで1931年にKlempererとRabinらによりはじめて報告された¹⁾. Englandらの報告では, 発生率は10万人あたり2.8人ときわめて稀である²⁾. SFTは胸膜から発生することが多いが, 四肢, 体幹など胸膜外発生の報告もある³⁾. 胸膜発生と胸膜外発生の比率は11:5とされている²⁾. 泌尿生殖器に限ると2005年に敦川らが1959年から2003年までの62例を集計している⁴⁾. それによると, 後腹膜腔26例, 腎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, 精嚢腺2例であった.

今回, われわれが調べた限り2000年以降に本邦で

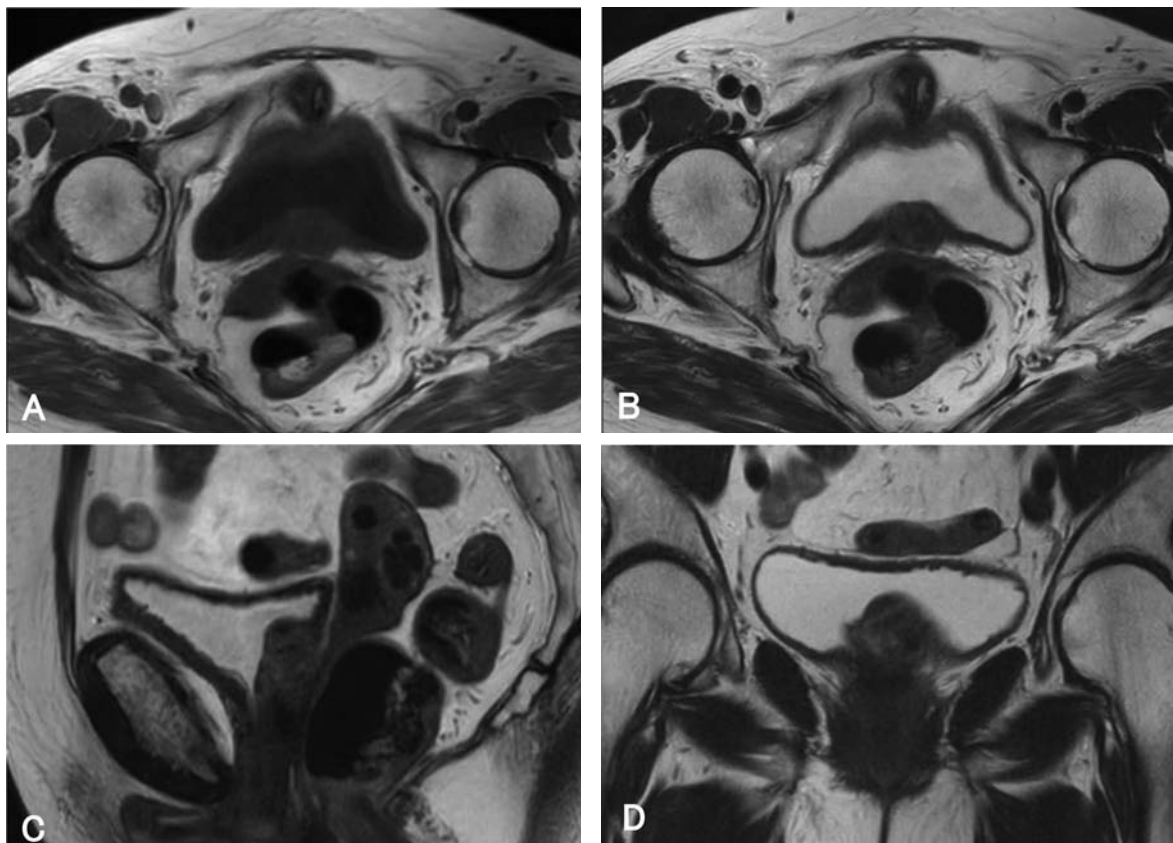


Fig. 4. Magnetic resonance imaging (MRI) reveals a tumor approximately 25 mm in the vesical trigone (A: T1-weighted image, B-D: T2-weighted image).

Table 1. Clinical features of 18 cases of solitary fibrous tumor of the urinary bladder in Japan

年齢	平均61.6歳 (38-79)
性別	
男性	14例 (78%)
女性	4例 (22%)
主訴	
排尿障害	11例 (46%)
肉眼的血尿	4例 (17%)
腹部腫瘍	4例 (17%)
無症状	3例 (12%)
腹痛	2例 (8%)
発生部位	
側壁	5例 (28%)
後壁	4例 (22%)
頸部	3例 (17%)
三角部	2例 (11%)
頂部	1例 (5%)
平均最大径	7.9 cm (0.85-18)
悪性所見の有無	
有	2例 (11%)
無	12例 (67%)
治療方法	
膀胱部分切除 (1例はロボット支援腹腔鏡下)	11例 (61%)
TURBT	2例 (11%)
経尿道的腫瘍核出術	2例 (11%)
膀胱全摘	3例 (17%)
予後	
再発あり (膀胱内) (うち1例死亡)	2例 (11%)

は自験例を含め18例の膀胱発生が報告されている⁵⁻¹¹⁾ (抄録を含む Table 1)。18例の平均年齢は61.6歳 (37~79歳)、男性14例、女性4例と男性に多かった。腫瘍径は8.5 mm から18 cmと様々であった。腫瘍径の小さいものは無症状のことが多いが腫瘍が大きくなると腫瘍触知や排尿障害、血尿などが生じる。本邦報告例の約半数で排尿障害を生じていた。自験例は腫瘍径65 mm と大きかったが排尿障害の訴えはなかった。

SFT の腫瘍随伴症状として約5%の症例で腫瘍から産生される insulin-like growth factor (IGF)-II による低血糖発作を併発することがある^{12,13)}。敦川らは泌尿生殖系の SFT 62例中5例 (8.0%) に低血糖発作を併発したと報告している⁴⁾。今回集計した18例中1例で低血糖症状を併発していた⁶⁾。

診断においては特徴的な画像所見はないが、Giant DT らが詳細な部位・モダリティ別に検討を行っている¹⁴⁾。それによると、CT では「膠原繊維の含有率に比例した低吸収域」を、MRI では「組織を反映した T2 強調像での不均一信号と膠原繊維を反映した T2 強調画像/T1 強調画像での低信号域」を呈し、造影

CT/MRI では「多血性を反映した強い造影効果」を呈すると報告しており、マルチモダリティで評価することが診断に有効であると考えられる。

確定診断は病理組織学的検査が必要である。病理組織所見では線維芽細胞様の紡錘形細胞が膠原線維を伴い不規則に増生する patternless pattern と、さまざまな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。免疫染色では CD34, Bcl-2 が陽性を示すことが多いとされている。England らは組織学的悪性を示唆する所見として、細胞密度の高い部位の存在、壊死の存在、核異型の存在、核分裂像が高倍率10視野あたり4個以上を挙げている²⁾。

治療について、本疾患は悪性の報告もあるため完全切除が原則である。本邦における膀胱 SFT の治療は腫瘍の大きさや発生部位により異なる。腫瘍径が小さいものや膀胱内腔に突出している SFT は TURBT や経尿道的腫瘍核出術が行われる。膀胱外腫瘍範囲の大きい場合は内視鏡手術での完全切除が難しく、膀胱部分切除や膀胱全摘除術が行われている。近年ではロボット支援腹腔鏡下手術で腫瘍を摘出した報告例もある。本邦報告の集計では膀胱部分切除と膀胱全摘例を合わせると全体の78%となり根治性を目指した治療が行われていることが示唆される。自験例では初診時腫瘍径が65 mm と大きく、膀胱全摘も提示したが本人が膀胱全摘を拒否し、TURBT を施行した。

SFT の多くは予後良好とされているが、胸膜由来の SFT のうち13~23%の症例で局所再発や転移がみられる²⁾。Gold らは局所再発に影響を与える因子として、外科的切除断端陽性、組織学的悪性、遠隔転移に影響を与える因子として、切除断端陽性、腫瘍サイズ (10 cm 以上)、組織学的悪性をあげている¹⁵⁾。

本邦の膀胱原発 SFT では今荘らが悪性の症例を報告している⁶⁾。今回の集計症例で再発例は自験例と今荘らの2例のみであった。今荘らの例は13 cm 大の腫瘍に対し膀胱部分切除を施行し、初発から7カ月後に再発腫瘍に対し切除術を施行した。その3カ月後に再発するも患者が手術を希望せず腫瘍は増大し初診から14カ月に死亡している。一方自験例は初診から3年後に再発しており再発までの期間が長い。その理由として、自験例は初診時腫瘍が65 mm と大きく初回の TURBT で腫瘍が残存した可能性があったが、組織診断で悪性所見を認めず再発までの時間が長かったのではないかと考える。再発時の組織診断では MIB-1 labeling index は2%であり悪性所見は認めず、腫瘍は25 mm と小さく TURBT で完全切除し得たので、その後30カ月の無再発生存を得られていると考える。

自験例のように病理組織学的に悪性所見を認めない症例でも再発を認める症例や、生物学的に悪性の経過

を示す症例も存在する²⁾。

そのため組織学的に悪性成分を認めない場合でも、特に腫瘍径の大きい症例や腫瘍残存の可能性が懸念される例では再発の可能性もあり、定期膀胱鏡や画像検査で長期間慎重に経過観察すべきである。

結 語

膀胱に発生した solitary fibrous tumor の 1 例を経験した。本疾患の多くは予後良好であるが、本症例のように術後数年して再発する症例もあり、厳重な経過観察が必要である。

文 献

- 1) Klemperer P and Rabin CB: Primary neoplasma 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) 中山靖夫, 高見雅司, 松本 寛, ほか: 子宮筋腫との鑑別が困難であった膀胱 solitary fibrous tumor の 1 例. *産と婦* **75**: 1030-1034, 2008
- 6) 今莊智恵子, 窪田鉄也, 中野敏彦, ほか: IGF-II を産生した膀胱悪性孤在性線維性腫瘍 (malignant solitary fibrous tumor). *臨泌* **64**: 247-250, 2010
- 7) 王 聡, 宮後直樹, 原田泰規, ほか: 膀胱に発生した孤立性線維性腫瘍の 1 例. *日泌尿会誌* **103**: 640-643, 2012
- 8) 清家健作, 亀山紘司, 加藤 卓, ほか: 膀胱より発生した solitary fibrous tumor の 1 例. *日尿紀要* **58**: 105-108, 2012
- 9) 河野由美子, 黒川弘晶, 寺澤理香, ほか: 膀胱に発生した孤立性線維性腫瘍 (solitary fibrous tumor) の 1 例. *臨放線* **57**: 1097-1100, 2012
- 10) 桧山佳樹, 田口圭介, 栗村雄一郎, ほか: 膀胱原発 Solitary fibrous tumor の 1 例. *泌尿器外科* **27**: 1699-1702, 2014
- 11) 荒木あずみ, 藤川直也, 渡邊岳志, ほか: 膀胱に生じた原発性孤立性線維性腫瘍 (Solitary fibrous tumor) の 1 例. *泌尿器外科* **27**: 1559-1562, 2014
- 12) 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**: 47-52, 1998
- 13) 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**: 359-399, 2009
- 14) Giant DT, Bokhari A, Bhatt S, et al.: Imaging features of solitary fibrous tumors. *AJR Am J Roentgenol* **196**: 487-495, 2011
- 15) Gold JS, Antonescu CR, Hajdu C, et al.: Clinicopathologic correlates of solitary fibrous tumors. *Cancer* **94**: 1057-1068, 2002

(Received on November 30, 2020)
(Accepted on April 30, 2021)