

閉鎖孔に発生した孤立性線維性腫瘍の1例

角田 真悠^{1)*} 宮崎 純子¹⁾ 佐々木 茂²⁾

1) 長野赤十字病院放射線科診断科

2) 長野赤十字病院放射線科治療科

A Case of Solitary Fibrous Tumor in the Obturator Foramen

Mayu TSUNODA¹⁾, Junko MIYAZAKI¹⁾ and Shigeru SASAKI²⁾1) *Department of Diagnostic Radiology, Nagano Red Cross Hospital*2) *Department of Radiation Oncology, Nagano Red Cross Hospital*

Solitary fibrous tumor (SFT) is a relatively rare tumor commonly localized in the pleura but can occur in any location of the body. However, SFT in the pelvis is very rare. We report a case with SFT in the obturator foramen. The patient was a woman in her 70s with the tumor in the left obturator foramen, found on CT images incidentally. Non-contrast CT images showed the tumor was well-delineated and of soft tissue density in the early phase of dynamic contrast-enhanced CT, marked tumor enhancement was seen. The delayed phase of dynamic contrast-enhanced CT showed persistent enhancement. T2-weighted images showed a high intensity tumor with a flow void within the tumor. Surgical resection was performed, and the tumor was diagnosed as SFT pathologically. To our knowledge, this is the first case of SFT located in the obturator foramen. *Shinshu Med J 69: 203–207, 2021*

(Received for publication November 20, 2020; accepted in revised form February 10, 2021)

Key words: solitary fibrous tumor, obturator foramen

孤立性線維性腫瘍, 閉鎖孔

I 緒 言

孤立性線維性腫瘍 (solitary fibrous tumor: 以下, SFT と略記) は主に胸腔に発生する稀な腫瘍であり, 骨盤に発生する SFT は少ない。今回我々は閉鎖孔に発生した SFT を経験したため報告する。

II 症 例

症例: 70歳代, 女性。

主訴: 左閉鎖孔に腫瘍を指摘された。

現病歴: 右上腹部痛の精査で行った造影 CT で偶然に左閉鎖孔に腫瘍を指摘され, 精査のため当院を受診した。

入院時現症: 自発痛なし。左鼠径部に軽度の圧痛あり。

検体検査所見: 特記すべき所見なし。

臨床所見上は paraganglioma 疑い

CT 所見 (図 1): 左閉鎖孔に 40×22×20 mm の分葉状の境界明瞭な腫瘍を認めた。単純 CT では均一な等濃度を示した。この腫瘍はダイナミック CT の早期相で強く濃染され, 後期相で造影効果が持続した。

MRI 所見 (図 2): 左閉鎖孔腫瘍は T1強調像で等信号を, T2強調像では軽度高信号を呈し, 内部に flow void を示唆する低信号を認めた。拡散強調像では, 高信号を呈した。

FDG-PET/CT 所見 (図 3): 左閉鎖孔腫瘍には軽度の FDG 集積 (SUV max: 2 程度) を認めた。

読影結果: 以上より, 画像診断上は閉鎖孔ヘルニア, 神経鞘腫, キャッスルマン病 (ヒアリン血管型) などが鑑別に挙げられた。

入院後経過: 術前の診断では, 臨床経過と併せて, 神経鞘腫その他神経原性腫瘍が鑑別に挙げられた。腹腔鏡下・大腿切開下閉鎖孔腫瘍摘出術を施行した。

* 別刷請求先: 角田真悠 〒388-8004
長野市篠ノ井会666-1 篠ノ井総合病院放射線科
E-mail: shin.cherry91@gmail.com

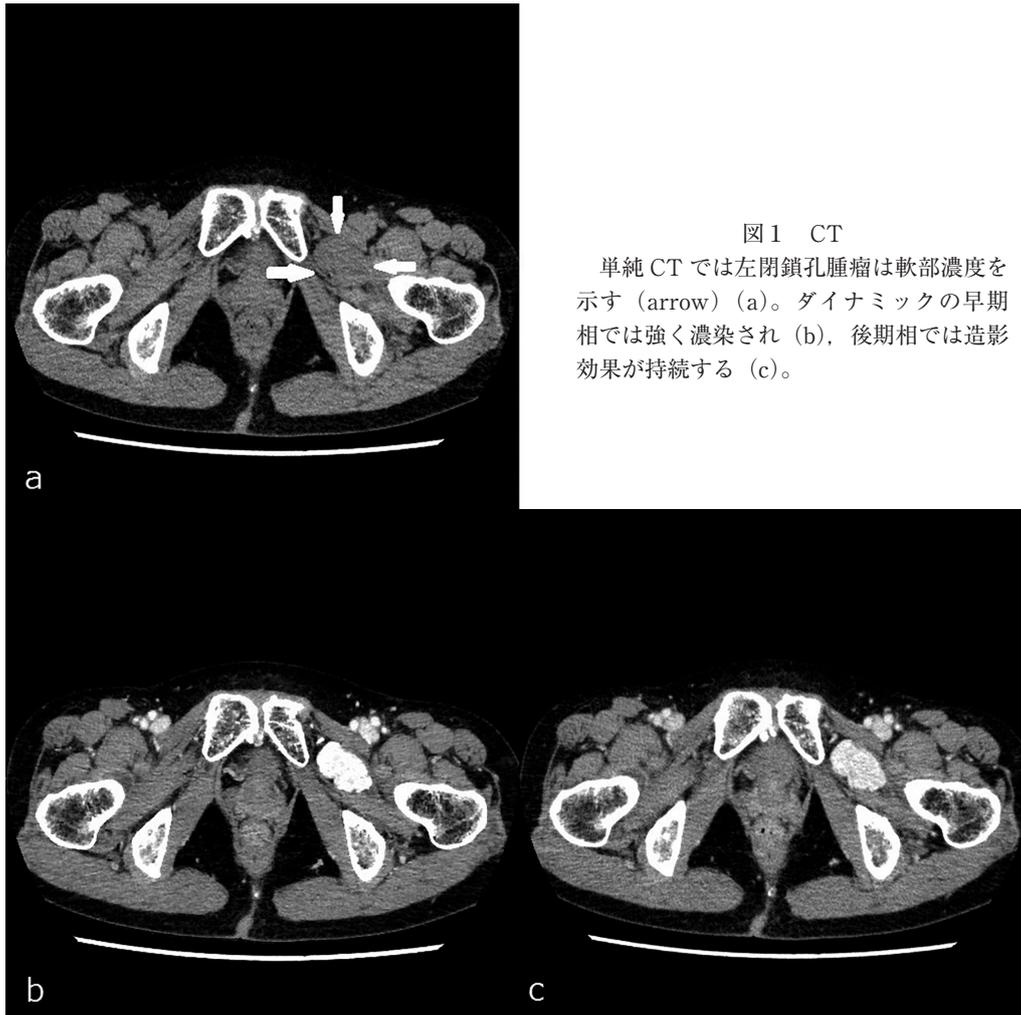


図1 CT

単純CTでは左閉鎖孔腫瘍は軟部濃度を示す (arrow) (a)。ダイナミックの早期相では強く濃染され (b)，後期相では造影効果が持続する (c)。

病理所見 (図4)：摘出された腫瘍の断面は褐色充実性であった。組織学的には比較的均一な紡錘形細胞が増殖しており、腫瘍細胞間に硝子化した膠原線維を認めた。腫瘍内に多数の毛細血管の発達を認めたが壊死は認めなかった。核分裂像は1個/10 HPFで確認された。免疫染色ではCD34およびEMA (EMAは限局性)で陽性を示し、S-100, chromograninA, synaptophysin, α -smooth muscle actin, desmin, AE1/AE3で陰性を示した。ki-67 labeling indexは約1%でSTAT6陽性であったことからSFTと診断された。

III 考 察

SFTは1931年に胸膜原発のsolitary fibrous mesotheliomaとして報告され、従来中皮細胞由来であると考えられてきた¹⁾。病理所見では紡錘形細胞が不規則に増殖し、pattern less patternと呼ばれる像がみられることがある。免疫染色では間葉系細胞由来を示す染色 (CD 34, Vimentin) が陽性を示し、上皮・中

皮細胞由来を示す染色 (EMA, AE1/AE3, keratin など) や神経または筋肉への分化を示す染色 (S-100, desmin, α -smooth muscle actin など) が陰性を示すことから中皮下の間葉系細胞由来とされている。近年は免疫染色におけるSTAT6が特異的な所見とされている²⁾。また、Ki-67が10%以上であるかどうかは悪性のSFTであるかを鑑別するのに有用であるとの報告がある³⁾。本症例においてはCD34, STAT6が陽性で、SFTと診断した。

SFTの好発部位は胸腔であり、腹部骨盤のSFTは数例報告されているのみである⁴⁾⁻⁶⁾。SFTが発生した骨盤の部位について、Fernandezら⁴⁾はpresacral, adnexalを、Liら⁵⁾はpararectal, recrovesical, paravesical, presacral, prevesicalを、Tianら⁶⁾はbladder, prostate, ovaryを報告している。我々が検索した範囲では閉鎖孔に発生した報告はなかった。

単純CTではSFTは軟部濃度を示すが、内部の嚢胞成分や粘液変性の有無などによっては不均一な濃度

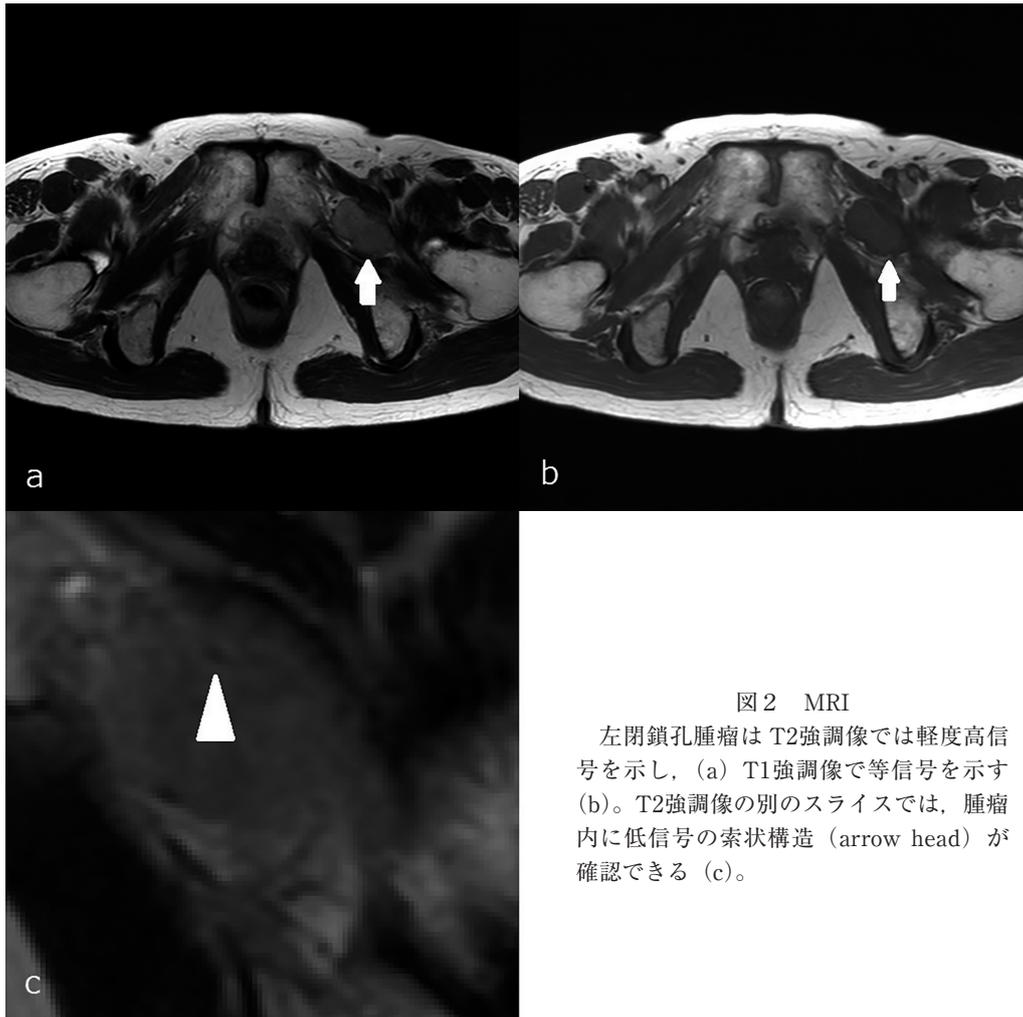


図2 MRI

左閉鎖孔腫瘍は T2強調像では軽度高信号を示し、(a) T1強調像で等信号を示す (b)。T2強調像の別のスライスでは、腫瘍内に低信号の索状構造 (arrow head) が確認できる (c)。

を示すこともある。ダイナミック CT では造影パターンは線維化の程度や血管の増生、嚢胞成分または粘液様変性、壊死の有無により異なるとされている^{4)~6)}。本症例では単純 CT では均一な軟部濃度腫瘍を示した。これは腫瘍内に壊死がないことに一致した。ダイナミック CT の早期相で見られた腫瘍内の不均一な強い濃染は、病理所見で腫瘍内に発達した多数の毛細血管を反映していると考えられた。後期相で見られた腫瘍内に持続する濃染像に関しては、線維化を呈する領域では後期相での濃染が認められるとの報告があり⁶⁾、腫瘍細胞間に見られた膠原線維の存在を反映した所見と考えられた。

SFT は T1強調像で中等度から低信号を示す。T2強調像で低信号だが筋と比較すると軽度高信号を示す例がある。内部に含まれる線維化や血管、出血、壊死によっては、内部の T1強調像または T2強調像で高信号を示す領域や flow void が観察される^{4)~6)}。本症例の MRI 所見は既存の報告に一致した。

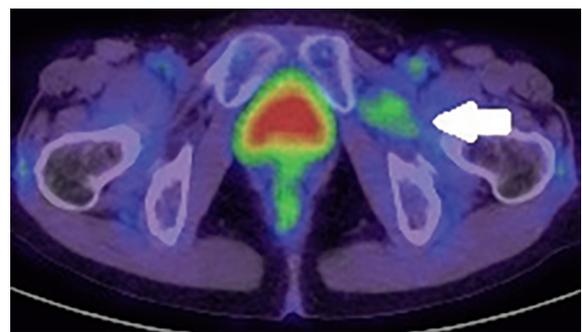


図3 FDG-PET/CT

左閉鎖孔腫瘍に弱い集積がある (arrow)。

FDG-PET/CT の臨床的意義は未だ定まってはいるが、SFT が良性の場合には低い集積を、悪性では高い集積を示す報告がある⁴⁾。本症例の病理所見は良性を示唆しており、FDG 集積が軽度であったのは良性に一致した。

本症例の鑑別診断として、画像上は閉鎖孔ヘルニア、神経鞘腫、キャッスルマン病 (ヒアリン血管型) が挙

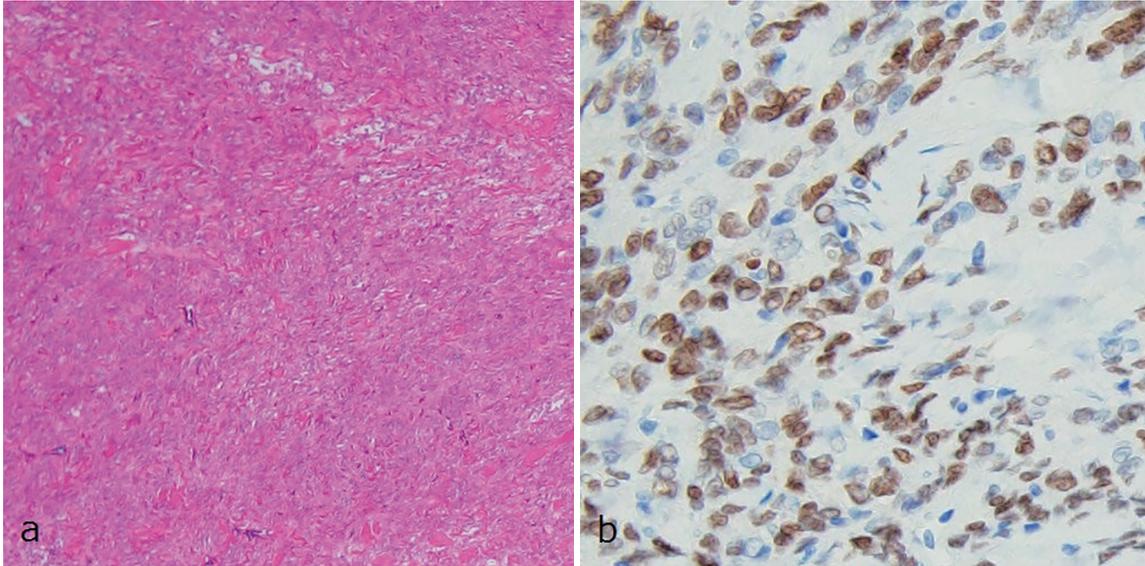


図4 病理

HE染色(×40)では紡錘形細胞の増殖と硝子化した膠原線維を認める(a)。STAT6(×200)は陽性を示す(b)。

がった⁷⁾⁻⁹⁾。閉鎖孔ヘルニアは腸管との交通がない点で否定的であった。神経鞘腫はT2強調像でしばしば辺縁が高信号、中央が低信号、いわゆる標的徴候(target sign)を示す。本症例ではこの所見は見られなかった。キャッスルマン病(ヒアリン血管型)は多血性病変であり、CTやMRI所見もSFTと類似しているため、本症例の画像所見ではキャッスルマン病(ヒアリン血管型)との鑑別は困難と考えられた。

IV 結 語

閉鎖孔に発生したSFTの1例を報告した。発生部位としては極めて稀であるが、画像所見を詳細に解析

することで診断に迫れる可能性があると考えられた。

本症例は、2021年3月22日より開催のJRS第457回日本医学放射線学会関東地方定期大会にて発表した。

謝 辞

長野赤十字病院放射線診断科、井原信磨先生には論文の執筆に際してご指導、ご鞭撻いただき深謝いたします。信州大学医学部附属病院病理診断科、佐藤良紀先生および長野赤十字病院病理部、里見英俊先生には、病理診断および所見に関するご指導、ご鞭撻を頂きました。心より感謝申し上げます。

文 献

- 1) Klemperer P, Rabin CB: Primary neoplasm of the pleura. A report of five cases. Arch Pathol 11: 385-412, 1931
- 2) Doyle LA, Vivero M, Fletcher CD, Mertens F, Hornick JL: Nuclear expression of STAT6 distinguishes solitary fibrous tumor from histologic mimics. Mod Pathol 27: 390-395, 2014
- 3) Diebold M, Soltermann A, Hottinger S, et al: Prognostic value of MIB-1 proliferation index in solitary fibrous tumors of the pleura implemented in a new score—a multicenter study. Respiratory Research 18: 210, 2017
- 4) Fernandez A, Conrad M, Gill RM, Chiu WT, Kumar V, Behr S: Solitary fibrous tumor in the abdomen and pelvis: A case series with radiological findings and treatment recommendations. Clinical Imaging 48: 48-54, 2018
- 5) Li XM, Reng J, Zhou P, et al: Solitary fibrous tumors in abdomen and pelvis: imaging characteristics and radiologic-pathologic correlation. World J Gastroenterol 20: 5066-5073, 2014
- 6) Tian TT, Wu JT, Hu XH, et al: Imaging findings of solitary fibrous tumor in the abdomen and pelvis. Abdom Imaging 39: 1323-1329, 2014
- 7) 剣持雅一, 佐藤嘉高, 森下紀夫, 石井 博, 村上努士, 常光謙輔: CTによる非嵌頓閉鎖孔ヘルニア診断の可能性について. 日臨外会誌 62: 353-357, 2001

閉鎖孔に発生した孤立性線維性腫瘍の1例

- 8) Beaman FD, Kransdorf MJ, Menke DM: Schwannoma: Radiologic-Pathologic correlation. Radiographics 24: 1477-1481, 2004
- 9) Le A, Shan L, Wang Z, et al: Laparoscopic treatment for retroperitoneal hyaline-vascular type localized Castleman's disease (LCD) in the iliac vessel region. Int J Clin Exp Med 8: 19948-19953, 2015

(R 2. 11. 20 受稿; R 3. 2. 10 受理)
