
 症 例 報 告

膵原発 Solitary Fibrous Tumor の 1 例

仲野 哲矢・皆川 昌広・高野 可赴
 廣瀬 雄己・滝沢 一泰・小林 隆
 坂田 純・若井 俊文

新潟大学大学院医歯学総合研究科
 消化器・一般外科学分野（第一外科）

味岡 洋一

新潟大学大学院医歯学総合研究科
 分子・診断病理学分野（第一病理）

A Case of Solitary Fibrous Tumor of the Pancreas

Tetsuya NAKANO, Masahiro MINAGAWA, Kabuto TAKANO
 Yuki HIROSE, Kazuyasu TAKIZAWA, Takashi KOBAYASHI
 Jun SAKATA and Toshifumi WAKAI

*Division of Digestive and General Surgery, Niigata University
 Graduate School of Medical and Dental Sciences*

Yoichi AJIOKA

*Division of Molecular and Diagnostic Pathology, Niigata University
 Graduate School of Medical and Dental Sciences*

要 旨

症例は 69 歳男性。下肢蜂窩織炎の精査中に膵頭部に腫瘤を指摘され当科紹介となった。腹部 CT 検査で膵頭部に早期濃染し持続濃染を呈する 2cm 弱の腫瘤を認めた。術前の内分泌学検査では、血中インスリン値 $4\mu\text{U/L}$ 、血中ガストリン値 132pg/mL と正常範囲内であり、非機能性膵神経内分泌腫瘍の術前診断で垂全胃温存膵頭十二指腸切除術を施行した。病理組織学検査では紡錘形の腫瘍細胞が様々な密度で混在し、免疫組織化学検査では、CD34 陽性、bcl-2 陽性、c-kit 陰性、S-100 陰性であり Solitary fibrous tumor と診断された。Solitary fibrous tumor は主

Reprint requests to: Tetsuya NAKANO
 Division of Digestive and General Surgery
 Niigata University Graduate School of
 Medical and Dental Sciences
 1-757 Asahimachi-dori Chuo-ku,
 Niigata 951-8510 Japan

別刷請求先：〒950-8510 新潟市中央区旭町通 1-757
 新潟大学大学院医歯学総合研究科消化器・
 一般外科学分野（第一外科） 仲野 哲 矢

に胸膜に発生する腫瘍であり、脾原発 Solitary fibrous tumor の報告は稀であるため文献的考察を加えて報告する。

キーワード：solitary fibrous tumor (SFT), 限局性線維性腫瘍, 脾臓, 間葉系腫瘍

緒 言

限局性線維性腫瘍 (Solitary Fibrous Tumor ; 以下, SFT) は, 線維芽細胞様の紡錘形細胞が比較的厚い膠原線維束により隔てられて増殖し, 限局的な腫瘍を形成する稀な腫瘍である¹⁾。多くは胸膜に発生するが, 他の全身の様々な部位での発生が報告されている²⁾。今回, 極めて稀な脾原発 SFT の1例を経験したので報告する。

症 例

症 例：69歳, 男性。

主 訴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：高血圧, 慢性閉塞性肺疾患

現病歴：2012年5月上旬から右下肢の腫脹あり当院救急外来を受診し, 下肢蜂窩織炎の診断で

入院となった。精査目的のCT検査で脾頭部に腫瘤を指摘されたため, 同年6月精査加療目的に当科紹介となった。

入院時現症：身長163cm, 体重93kg, 貧血, 黄疸を認めなかった。腹部は平坦, 軟で肝脾は触知しなかった。

入院時血液検査所見：血算, 生化学検査に異常を認めなかった。術前の内分泌学検査では, 血中インスリン値 $4\mu\text{U/L}$, 血中ガストリン値 132pg/mL と正常範囲内であった。腫瘍マーカーは, 血清CEA値 6.6ng/mL , 血清CA19-9値 5IU/L といずれも軽度上昇していた。

腹部CT検査所見：脾頭部に径13mm大の早期濃染し持続濃染する腫瘤を認めた(図1)。明らかな所属リンパ節転移, 遠隔転移を示唆する所見は認めなかった。

腹部MRI検査所見：脾頭部に径14mm大の早期濃染する腫瘤を認めた。総胆管, 主脾管の狭窄

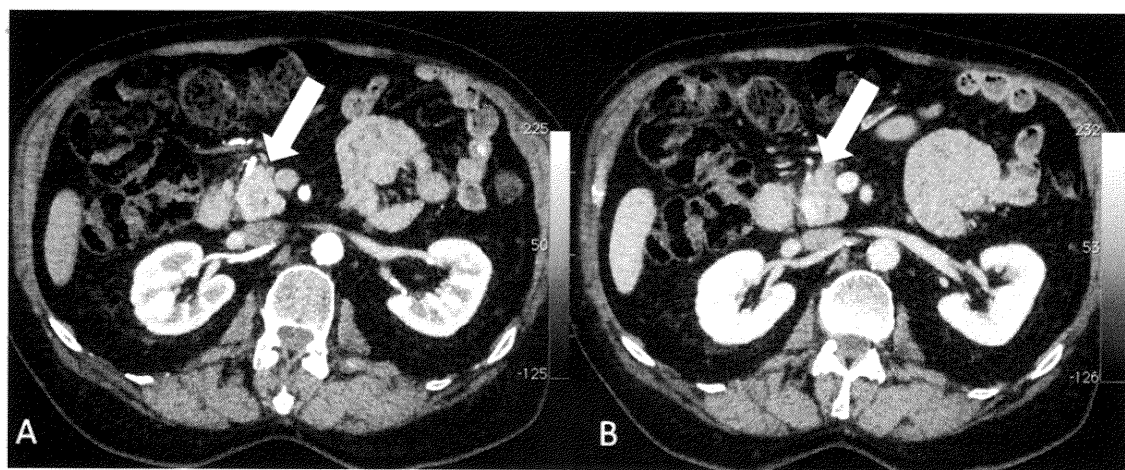


図1 腹部CT検査

- (A) 造影CT検査の動脈相では, 脾頭部に13mm大の辺縁から早期濃染される腫瘤性病変を認めた。
(B) 造影CT検査の門脈相では, 腫瘤中心部まで濃染し, 持続濃染を認めた。

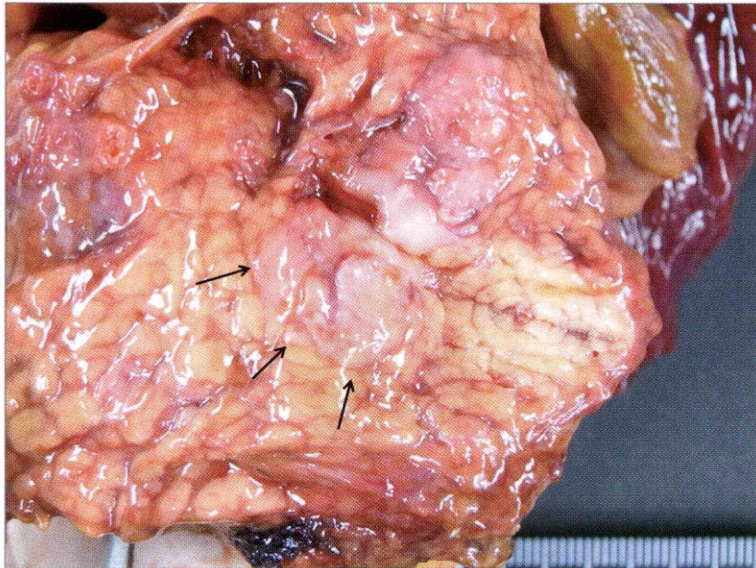


図 2 切除標本の肉眼像
脾頭部に弾性軟の 20 × 10mm 大の腫瘤を認めた (黒矢印).

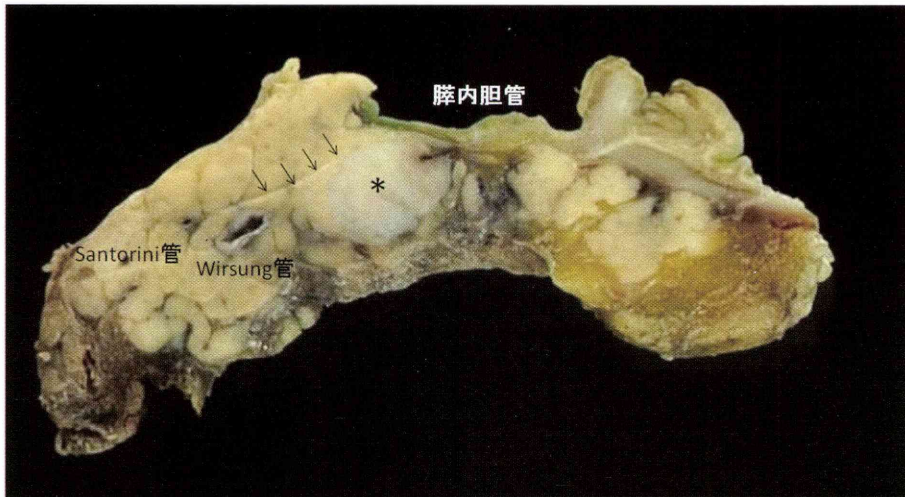


図 3 ホルマリン固定後の断面肉眼像
灰白色充実性腫瘍 (*) が脾内胆管近傍に存在し, 脾腹背側癒合部 (矢印) から発生し
腹側へと進展していた.

像は認めなかった.

EUS 検査所見：脾頭部に径 18mm 大の境界明瞭な低エコー腫瘤を認めた. 内部エコーは均一で, 明らかな浸潤所見は認めなかった.

以上より, 非機能性脾内分泌腫瘍と診断し開腹手術を施行した.

手術所見：肝転移, 脾所属リンパ節転移, 腹膜播種は認めなかった. 腫瘍は脾頭部に限局してお

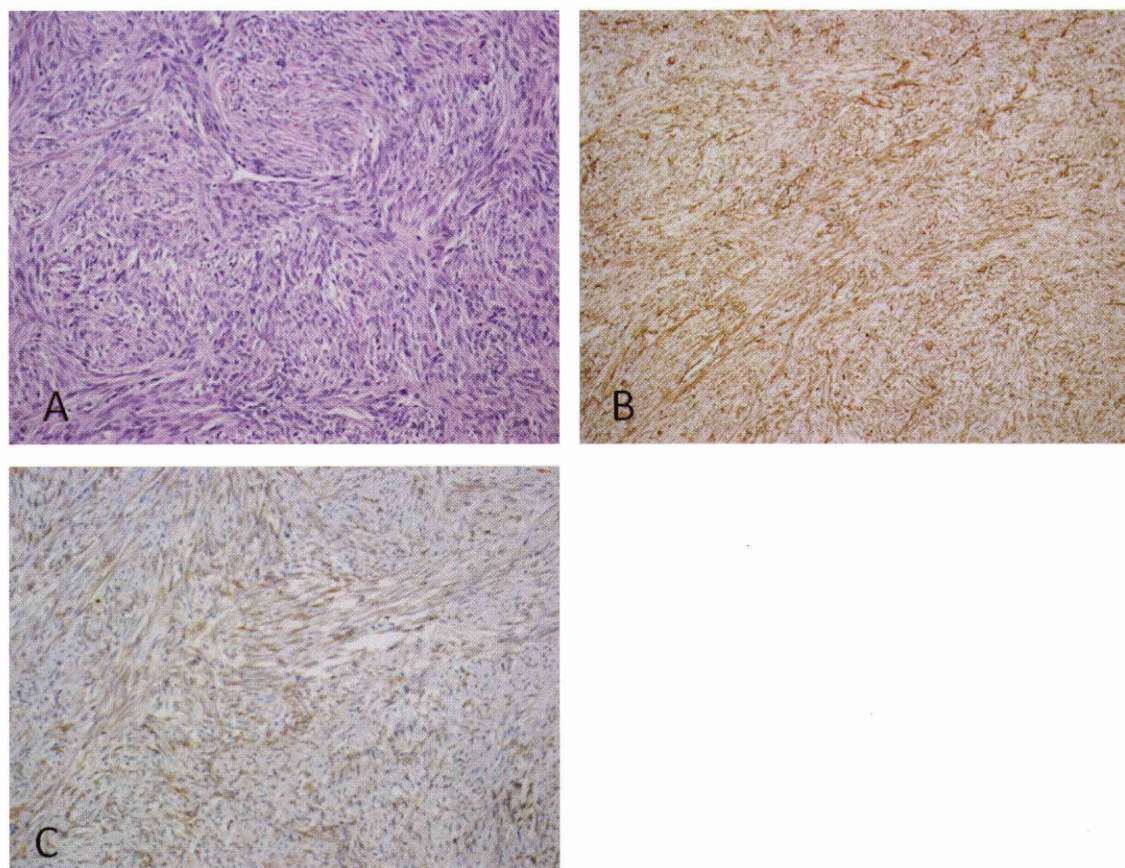


図4 病理組織学的検査所見

- (A) 類円形から楕円形核を有する紡錘形腫瘍細胞が膠原線維化とともに特定の配列を示さずに増生していた (HE 染色×200).
 (B) 腫瘍細胞は CD34 陽性であった (CD34 免疫染色×200).
 (C) 腫瘍細胞は bcl-2 陽性であった (bcl-2 免疫染色×200).

り、亜全胃温存脾頭十二指腸切除術、D1 リンパ節郭清を施行した。

切除標本：20×10mm 大の線維被膜に覆われた弾性軟な灰白色充実性腫瘍であった (図2)。また、腫瘍は脾内胆管近傍に存在し、腹側脾と背側脾の癒合部からの発生が示唆された (図3)。

術後経過：International Study Group of Post-operative Pancreatic Fistula³⁾ Grade B の脾液瘻を認めたが保存的治療にて軽快し、術後第46病日に退院した。

病理組織学的検査所見：類円形から楕円形核を

有する、線維芽細胞様の紡錘形腫瘍細胞が特定の配列を示さずに増生していた (図4)。免疫組織化学検査では、CD34 陽性、bcl-2 陽性、c-kit 陰性、S-100 陰性であり脾原発 SFT と診断された。Ki-67 標識率は1%であった。

考 察

SFT は、1931 年に Klemperer らが胸膜に発生する線維性腫瘍として初めて報告した⁴⁾。有病率は人口10万人あたり2.8人と稀な腫瘍である。病

表 1

著者 (年度)	年齢/性別	症状	部位	腫瘍径 (cm)	術前診断	手術術式	悪性所見	経過
#1 Luttges -1999	50/F	なし	体部	5.5	PNET	DP	なし	20か月
#2 Chatti -2006	41/F	腹痛	体部	13	PNET	Enucleation	なし	3日後死亡
#3 Gardini -2007	62/F	腹痛	頭部	3	記載なし	PD	なし	16か月
#4 Miyamoto -2007	41/F	なし	体尾部	2	PNET	Laparoscopic enucleation	なし	7か月
#5 Srinivasan -2008	78/F	背部痛	体部	5	PNET	DP	なし	7か月
#6 Kwon -2008	54/M	なし	体部	4.5	PNET/SPT	Median Segmentectomy	なし	記載なし
#7 石渡 -2009	58/F	なし	頭部	3	PNET	PPPD	なし	40か月
#8 Chetty -2009	67/F	なし	頭部	2.6	PNET	PD	なし	6か月
#9 Sugawara -2010	55/F	なし	頭部	7	PNET	PD	なし	記載なし
#10 Tasdemir -2012	24/F	腹痛	頭部	18.5	Mesenchymal tumor	Enucleation	なし	3か月
#11 山梨 -2012	50/M	なし	体部	10	PNET	DP	Mitosis Hypercellularity	局所再発
#12 Current case	69/M	なし	頭部	2	PNET	SSPPD	なし	12か月

PNET: pancreatic neuroendocrine tumor

SPT: solid-pseudopapillary tumor

DP: distal pancreatectomy

PD: pancreaticoduodenectomy

PPPD: pylorus-preserving pancreaticoduodenectomy

理組織像では、紡錘形腫瘍細胞が様々な程度の膠原線維化とともに特定の配列を示さずに増殖し、免疫組織化学検査では、CD34 が陽性、bcl-2 が陽性であることが特徴的な所見である⁵⁾。約 50 % は胸腔内に発生するが、その他にも肝、腎、頭蓋内など、様々な臓器での発生が報告されている⁶⁾。

PubMed (1950 年 1 月～2012 年 12 月、キーワード:「Solitary fibrous tumor」,「Pancreas」) および医学中央雑誌 (1983 年 1 月～2012 年 12 月、会議録を除く、キーワード:「Solitary fibrous tumor」「膵」) を検索した範囲では、膵原発の SFT の報告は本例を含め 12 例^{7) - 17)}であった

(表 1)。年齢は 24 ～ 78 歳、平均 46 歳と中年に多く認め、男女比は 1 : 3 と女性に多かった。発見契機としては、本症例と同様に偶発的に発見される症例がほとんどであるが、腹痛、背部痛などの症状を呈することもある。

CT 検査では、膵原発 SFT は比較的明瞭な腫瘍として描出され、dynamic study では早期濃染と静脈相までの遅延濃染を認めることから、その多くが術前に膵神経内分泌腫瘍と診断されていた(表 1)。他臓器発生の SFT と同様に予後に関しては一定の見解が得られていないが、外科的切除が第 1 選択となる。手術術式に関しては、腫瘍核出術から膵頭十二指腸切除、膵体尾部切除と、通常

の膵腫瘍に準じた手術術式が幅広く選択されていた。山梨ら¹⁷⁾は、悪性の膵原発SFTを認め、同症例は残膵再発を認めたと報告している(表1)悪性化の指標としては、腫瘍径10cm以上、壊死巣の存在、核分裂像が強拡大10視野中4個以上が指摘されており¹⁸⁾、慎重な経過観察が必要である。本症例は、腫瘍径2cm、Ki-67標識率は1%であり、悪性度は低い腫瘍と考えられた。

膵原発SFTの発生部位の多くは膵頭部、体部であり、尾側での報告は認めなかった。本症例では膵頭部の膵内胆管近傍に腫瘤を認めたが、本来SFTは中皮由来の結合組織から発生する腫瘍であり、膵内発生には疑問が残る。しかし、膵の発生学的側面から考えると、胎性第37日頃に腹側膵原基が胆管と伴に背側膵原基後方へ時計回りにまわりこみ癒合することから、同癒合部には中皮由来の組織が存在し、SFTの発生母地となる可能性があると考えられる。実際本症例では、腹側膵と背側膵の癒合部に腫瘍を認めたことから(図3)、同癒合部の中皮由来組織からの発生が示唆された。

結 語

膵原発SFTの1例を経験した。自験例の膵原発SFTの発生機序は、病理学的および発生学的な見地から、腹側膵と背側膵癒合部の中皮由来組織から発生したと考えられた。

文 献

- Cardillo G, Carbone L, Carleo F, Masala N, Graziano P, Bray A and Martelli M: Solitary fibrous tumors of the pleura: an analysis of 110 patients treated in a single institution. *Ann Thorac Surg* 88: 1632 - 1637, 2009.
- 藤田武朗, 大村泰之, 高尾智也, 西 英行, 福田和馬, 間野正之, 小松原正吉, 土井原博義, 清水信義, 田口孝爾: 横隔膜腹腔側に発生した悪性 solitary fibrous tumor の1例. *日消外会誌* 37: 1571 - 1576, 2004.
- Bassi C, Derveniz C, Butturini G, Fingerhut A, Yeo C, Izbicki J, Neoptolemos J, Sarr M, Traverso W and Buchler M: Postoperative pancreatic fistula: an international study group (ISGPF) definition. *Surgery* 138: 8 - 13, 2005.
- Klemperer P and Rabin CB: Primary neoplasms of the pleura: a report of five cases. *Arch Pathol* 11: 385 - 412, 1931.
- Gold JS, Antonescu CR, Hajdu C, Ferrone CR, Hussain M, Lewis JJ, Brennan MF and Coit DG: Clinicopathologic correlates of solitary fibrous tumors. *Cancer* 94: 1057 - 1068, 2002.
- 広松 孝, 秋田昌利, 長谷川洋, 坂本英至, 小松俊一郎, 河合清貴, 田畑智文, 夏目誠治, 青葉太郎, 都築豊徳: 後腹膜原発巨大 solitary fibrous tumor の1例. *日消外会誌* 39: 1604 - 1610, 2006.
- Luttges J, Mentzel T, Hubner G and Kloppel G: Solitary fibrous tumour of the pancreas: a new member of the small group of mesenchymal pancreatic tumours. *Virchows Arch* 435: 37 - 42, 1999.
- Chatti K, Noura K, Ben Reguig M, Bedioui H, Oueslati S, Laabidi B, Alaya M and Ben Abdallah N: Solitary fibrous tumor of the pancreas. A case report. *Gastroenterol Clin Biol* 30: 317 - 319, 2006.
- Gardini A, Dubini A, Saragoni L, Padovani F and Garcera D: Benign solitary fibrous tumor of the pancreas: a rare location of extra - pleural fibrous tumor. Single case report and review of the literature. *Pathologica* 99: 15 - 18, 2007.
- Miyamoto H, Molena DA, Schoeniger LO and Haodong Xu: Solitary fibrous tumor of the pancreas: a case report. *Int J Surg Pathol* 15: 311 - 314, 2007.
- Srinivasan VD, Wayne JD, Rao MS and Zynger DL: Solitary fibrous tumor of the pancreas: case report with cytologic and surgical pathology correlation and review of the literature. *JOP* 9: 526 - 530, 2008.
- Kwon HJ, Byun JH, Kang J, Park SH and Lee MG: Solitary fibrous tumor of the pancreas: imaging findings. *Korean J Radiol* 9: 48 - 51, 2008.
- 石渡裕俊, 林 毅, 吉田真誠, 黒岩巖志, 佐藤康史, 小船雅義, 瀧本理修, 木村康利, 長谷川匡, 平田公一, 加藤淳二: 膵 Solitary fibrous tumor の1例. *日本消化器病学会雑誌* 106: 1078 - 1085,

- 2009.
- 14) Chetty R, Jain R and Serra S: Solitary fibrous tumor of the pancreas. *Ann Diagn Pathol* 13: 339 - 343, 2009.
- 15) Sugawara Y, Sakai S, Aono S, Takahashi T, Inoue T, Ohta K, Tanada M and Teramoto N: Solitary fibrous tumor of the pancreas. *Jpn J Radiol* 28: 479 - 482, 2010.
- 16) Tasdemir A, Soyuer I, Yurci A, Karahanli I and Akyildiz H: A huge solitary fibrous tumor localized in the pancreas: a young women. *JOP* 13: 304 - 307, 2012.
- 17) 山梨高広, 鳥海史樹, 矢作雅史, 白鳥史明, 五十嵐一晴, 西 知彦, 半田 寛, 関根和彦, 向井清, 下山 豊: 再発を来した脾原発 malignant solitary fibrous tumor の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌* 45: 961 - 969, 2012.
- 18) 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.

(平成 25 年 10 月 8 日受付)