

CASE REPORT

Solitary fibrous tumor of the pleura の 3 切除例 —病理学的悪性度と画像所見の比較—

伴 秀利¹・西村嘉裕²・梁 徳淳³・安光 勉³

A Comparison of the Pathological Malignant Grade with the Preoperative Diagnostic Imaging of Three Resected Cases of Solitary Fibrous Tumor of the Pleura

Hidetoshi Ban¹; Yoshihiro Nishimura²; Dokusun Yan³; Tsutomu Yasumitsu³

¹Department of Respiratory Disease, Kobe Mariners Koseikai Hospital, Japan; ²Department of Surgery, Mito Chuo Hospital, Japan; ³Iseikai Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Solitary fibrous tumor of the pleura (SFTP) is a rare disease, and its malignant grade is difficult to evaluate before resection. **Cases.** In the preoperative diffusion-weighted magnetic resonance images (DW-MRI) of this series of 3 cases of SFTP, a low-grade-malignant SFTP in a 53-year-old woman presented no signal, a low-grade-malignant SFTP with relatively increased mitoses in a 66-year-old man presented a slightly high signal lesion, and a malignant SFTP in an 88-year-old man presented a heterogeneously high signal lesion. The tumors displayed no definite differences in their CT images or T1/T2-weighted MRI images. In addition, the case of the malignant SFTP showed a low standardized uptake maximum value on an FDG-PET image. **Conclusion.** DW-MRI may be useful for the preoperative evaluation of the malignant grade of SFTP.

(JLCC. 2011;51:712-717)

KEY WORDS — Solitary fibrous tumor of the pleura, Diffusion-weighted magnetic resonance image

Reprints: Hidetoshi Ban, Department of Respiratory Disease, Kobe Mariners Koseikai Hospital, 7-3-18 Nakayamatedori, Chuo-ku, Kobe-shi, Hyogo 650-0004, Japan (e-mail: hban_kobemariners@yahoo.co.jp).

Received May 30, 2011; accepted July 4, 2011.

要旨 — **背景.** Solitary fibrous tumor of the pleura (SFTP) は比較的稀な疾患で術前の悪性度評価が困難である。 **症例.** 我々の経験した 3 症例の SFTP の MRI 拡散強調画像において、53 歳女性の低悪性度の SFTP では無信号であり、66 歳男性の低悪性度だが軽度の細胞増殖を呈した SFTP では不均一な軽度高信号を認め、84 歳男性の malignant SFTP では不均一な高信号を呈した。い

ずれも CT や MRI T1・T2 強調画像では明確な差異を認めず、malignant SFTP 症例においては FDG-PET で軽度の集積率増加しか認めなかった。 **結論.** SFTP の悪性度の術前評価に MRI 拡散強調画像が有用である可能性が示唆された。

索引用語 — Solitary fibrous tumor of the pleura, MRI 拡散強調画像

はじめに

Solitary fibrous tumor of the pleura (SFTP) は比較的稀な疾患であり、低悪性度のものから malignant SFTP

と称される高悪性度のものまである。我々は病理学的悪性度の異なる SFTP の 3 切除例を経験し、その画像所見について若干の知見を得たので報告する。

¹神戸マリナーズ厚生会病院呼吸器科；²水戸中央病院外科；³医誠会病院。

別刷請求先：伴 秀利，神戸マリナーズ厚生会病院呼吸器科，

〒650-0004 兵庫県神戸市中央区中山手通 7-3-18(e-mail: hban_kobemariners@yahoo.co.jp).

受付日：2011 年 5 月 30 日，採択日：2011 年 7 月 4 日。

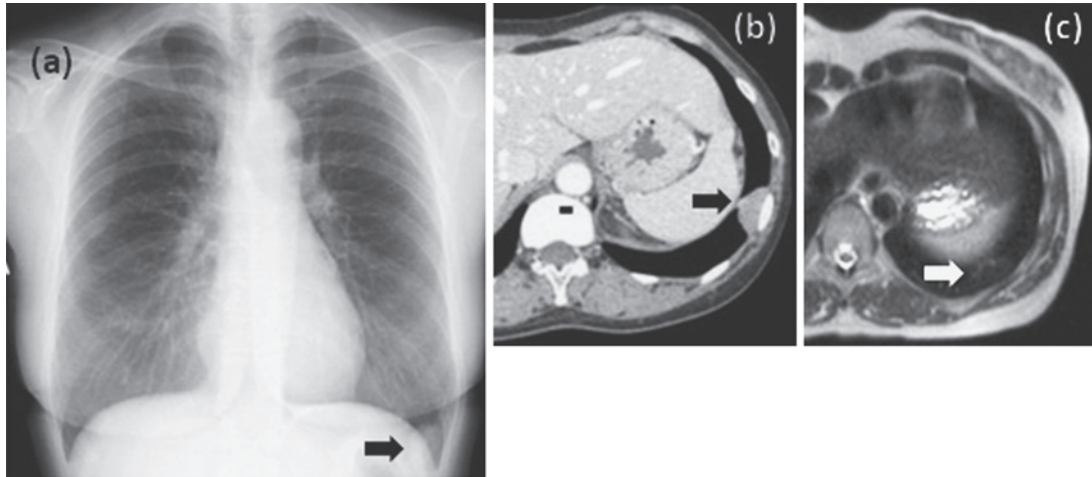


Figure 1. (a) Chest X-ray in case 1 showed a tumor on the left costophrenic angle (black arrow). (b) Chest enhanced CT showed a non-enhanced tumor (black arrow). (c) Chest MRI showed a tumor with a low- to isointense signal on a T2-weighted image (white arrow).

症 例

症例 1：53 歳，女性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：なし。

喫煙歴：なし。

現病歴：2008 年 3 月，検診胸部異常陰影により紹介受診した。

血液生化学検査：特記すべき異常なし。

画像所見：胸部単純 X 線で左肋骨横隔膜角に 2.5 cm 大の腫瘍陰影があり (Figure 1a)，胸部造影 CT では左横隔膜脚にはまり込む造影効果のない腫瘍を認めた (Figure 1b)。胸部 MRI では T2 低～等信号の腫瘍であり (Figure 1c)，拡散強調画像では無信号域を呈した (Figure 2a)。

手術所見：胸腔鏡下に，左 S⁹ 外側下縁に臓側胸膜からぶら下がっていた浸潤傾向のないポリープ状の腫瘍を切除した。

病理所見：顕著な膠原線維増殖を伴う異型の乏しい紡錘型細胞の束状増殖からなる病変で，細胞密度は低く一部に硝子化を示した。核異型や分裂像は認めず，肺内への浸潤も確認されず，SFTP と診断された (Figure 3)。

追加治療を行わず，術後 35 ヶ月無再発生存中である。

症例 2：66 歳，男性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：胃癌，大腸ポリープ，高血圧。

喫煙歴：なし。

現病歴：2009 年 3 月，検診胸部異常陰影により前医を受診し，気管支鏡などの精査により診断がつかず，切除及び確定診断の目的で紹介された。

血液生化学検査：特記すべき異常なし。

画像所見：胸部単純 X 線で右下肺野外側に 5 cm 大の腫瘍陰影があり (Figure 4a)，胸部単純 CT では中下葉間に体位によって変移変形する腫瘍として描出された (Figure 4b)。胸部造影 MRI では T2 高信号を基調とした不均一に造影される腫瘍を認め (Figure 4c)，拡散強調画像では不規則な軽度高信号域を呈した (Figure 2b)。

手術所見：胸腔鏡下に，中下葉間に比較的狭い基部で臓側胸膜から発生しているポリープ状の腫瘍を認め，一部に血管増生や表面不整を伴っていたため，十分なマージンをとって正常肺部分で切離し，腫瘍切除とした。迅速病理検査で，SFTP を強く疑う所見であった。

病理所見：紡錘型細胞の充実性増殖からなる病変で，細胞密度の低い部分は細胞成分が少なく硝子化した膠原線維が多く，細胞密度の高い部分は細胞境界不明瞭な紡錘型細胞が錯綜性の増殖を示した。MIB-1 labeling は 5% 未満であり (Figure 5)，SFTP と診断された。

追加治療を行わず，術後 24 ヶ月無再発生存中である。

症例 3：84 歳，男性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：虫垂炎，腎炎，狭心症，気管支喘息，前立腺肥大，尿道狭窄，両側白内障，角膜剥離。

現病歴：2006 年 8 月，通院中の近医内科より胸部異常陰影のため紹介された。CT 及び MRI 検査を施行し，左肺底区過誤腫の疑いとして経過観察となったが，腫瘍が増大し呼吸機能を阻害する可能性が生じたため 2007 年 9 月に再度紹介された。

血液生化学検査：特記すべき異常なし。

画像所見：胸部単純 X 線で心尖部を中心に 8.5 cm 大の腫瘍陰影があり (Figure 6a)，胸部造影 CT では左横隔

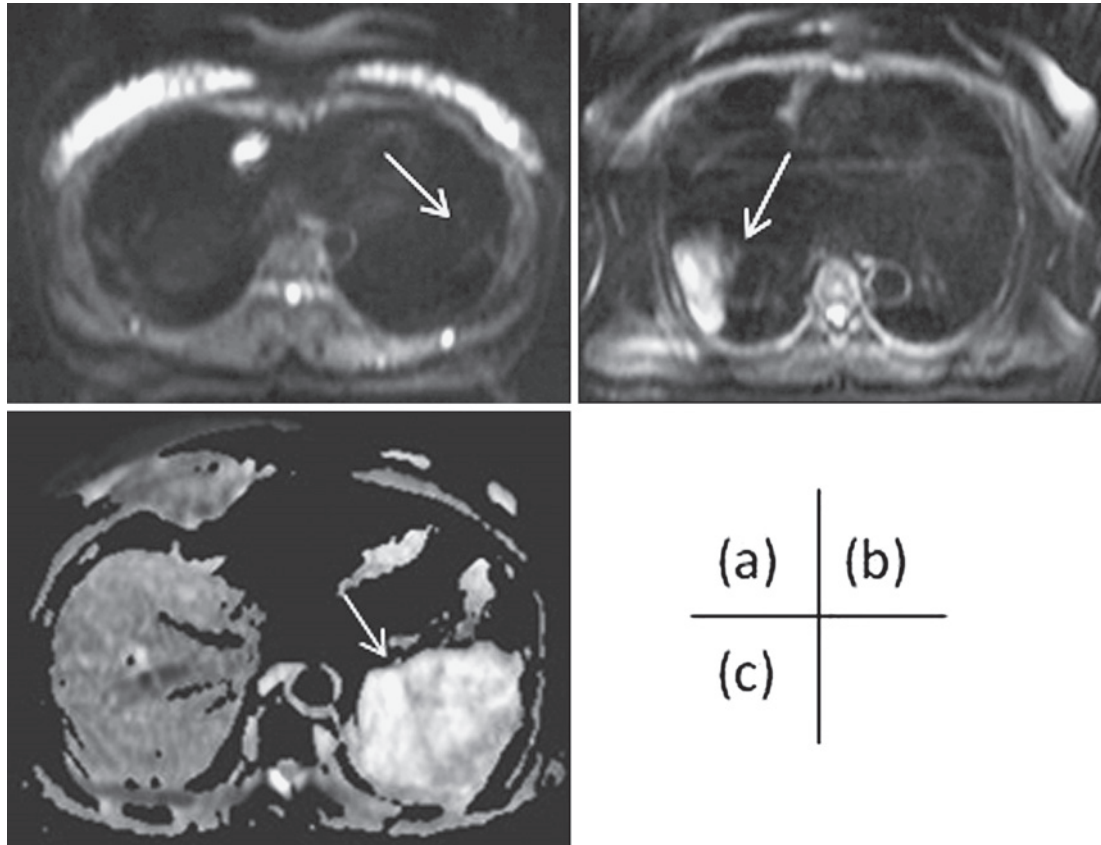


Figure 2. (a) Diffusion-weighted magnetic resonance image (DW-MRI) in case 1 showed no signal in the tumor (white arrow). (b) DW-MRI in case 2 showed a slightly hyperintense signal tumor (white arrow). (c) DW-MRI in case 3 showed a heterogeneously hyperintense signal tumor (white arrow).

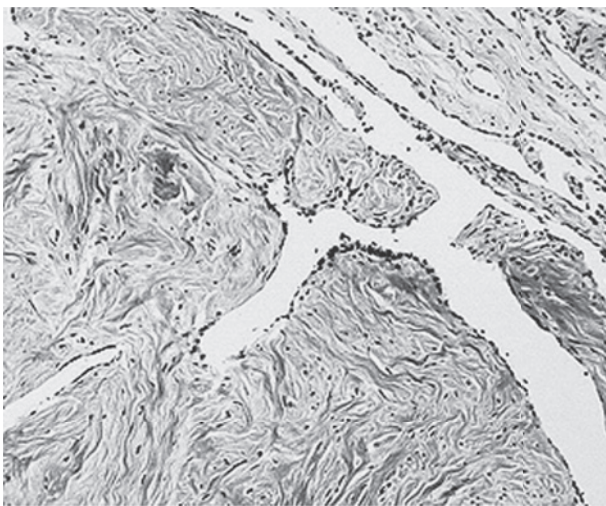


Figure 3. Microscopic findings in case 1 revealed hypocellular uniform findings with spindle cells traversed by dense broad collagen bands with some hyalinization. There was no nuclear pleomorphism, no mitoses, and no invasive tendency. The tumor was diagnosed as SFTP ($\times 100$).

膜に接して9×7 cm大の不規則に造影される腫瘤を認めた(Figure 6b). 胸部MRIではT1高信号・T2低信号を基調とした不均一な腫瘤を認め(Figure 6c), FDG-PETでは同部にSUVmax 3.1と軽度の集積率増加を認めた(Figure 6d). 拡散強調画像では不規則な高信号域として描出された(Figure 2c).

手術所見：左第6肋間側方開胸した。舌区尾側と連続し、肺底区腹側に浸潤し、心横隔膜角を中心に心嚢及び横隔膜面と強固に癒着していた腫瘍を、舌区のほぼ半分とS⁸の一部及び横隔膜の一部とともに切除した。

病理所見：類円形ないし楕円形の核を持つ紡錘型細胞の増殖に膠原線維束の増殖を伴い、細胞密度が高く核に大小不同があり、壊死を伴う部分を有し、脂肪織に接する部分では被膜が不明瞭となり脂肪織に浸潤していた。び漫性にCD34陽性で、MIB-1 labelingは約50%であり、malignant SFTPと診断された(Figure 7)。

追加治療を行わず無再発であったが、術後31ヶ月に他病死した。

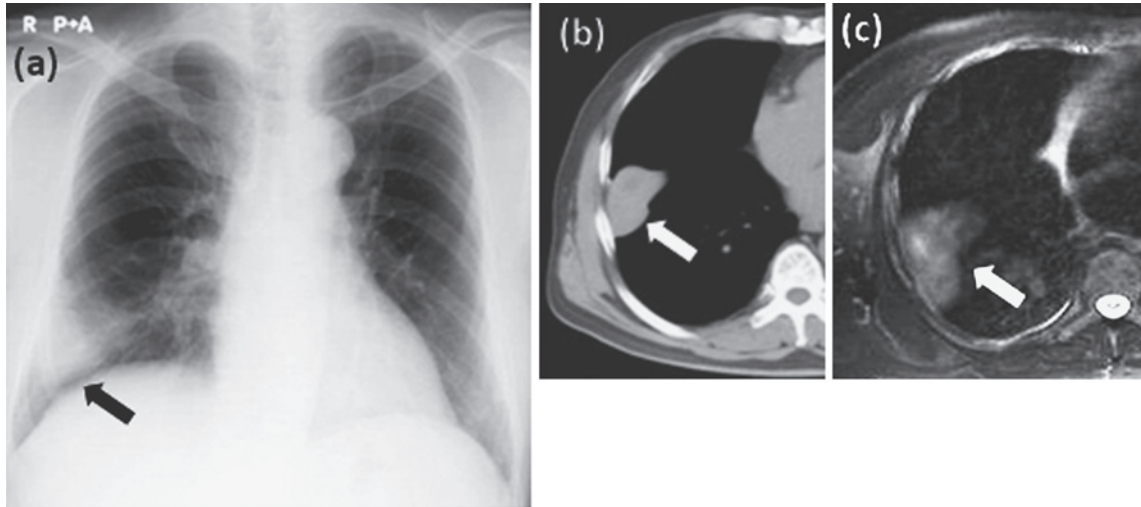


Figure 4. (a) Chest X-ray in case 2 showed a 5-cm tumor in the right lower lung field (black arrow). (b) Chest CT showed a mobile tumor between the right middle and lower lobes (white arrow). (c) Chest enhanced MRI showed a heterogeneously enhanced tumor with an isointense signal on a T2-weighted image (white arrow).

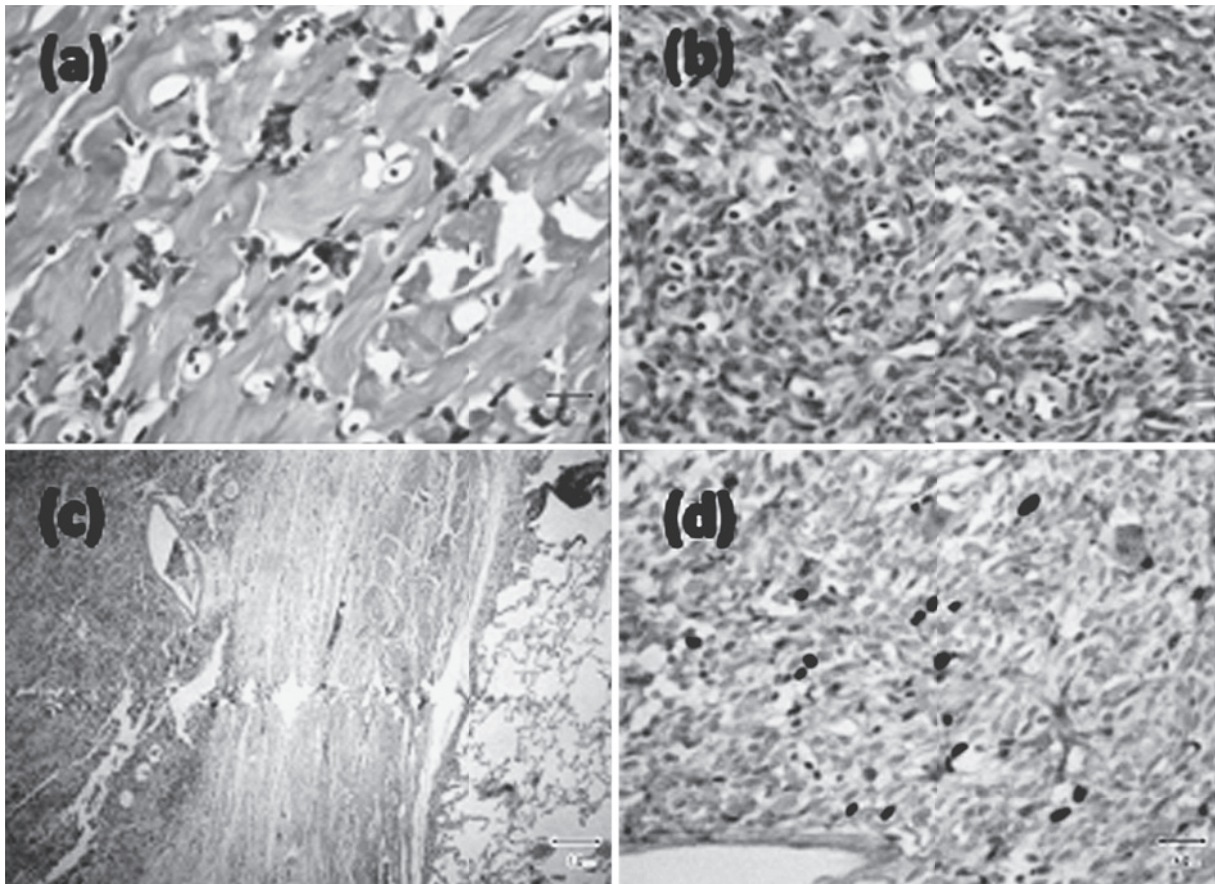


Figure 5. Microscopic findings in case 2 showed (a) a few uniform spindle cells traversed by dense broad collagen bands with some hyalinization at hypocellular sites ($\times 400$), (b) an indistinctly bordered area of spindle cells increased with a complicated pattern at the hypercellular site ($\times 400$), (c) no invasive tendency ($\times 100$), and (d) a MIB-1 labeling index of less than 5% even in the hypercellular site ($\times 400$).

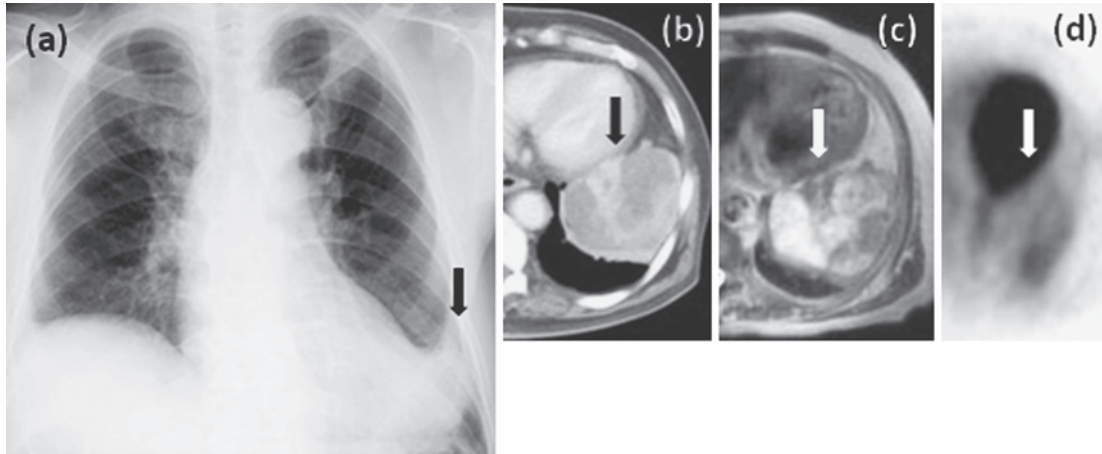


Figure 6. (a) Chest X-ray film of case 3 showed an 8.5-cm tumor in the left lower lung field (black arrow). (b) Chest enhanced CT showed a heterogeneously enhanced tumor (black arrow). (c) Chest MRI showed a tumor with a heterogeneous signal intensity on a T2-weighted image (white arrow). (d) FDG-PET showed low-level FDG accumulation with a SUVmax of 3.1 in the tumor (white arrow).

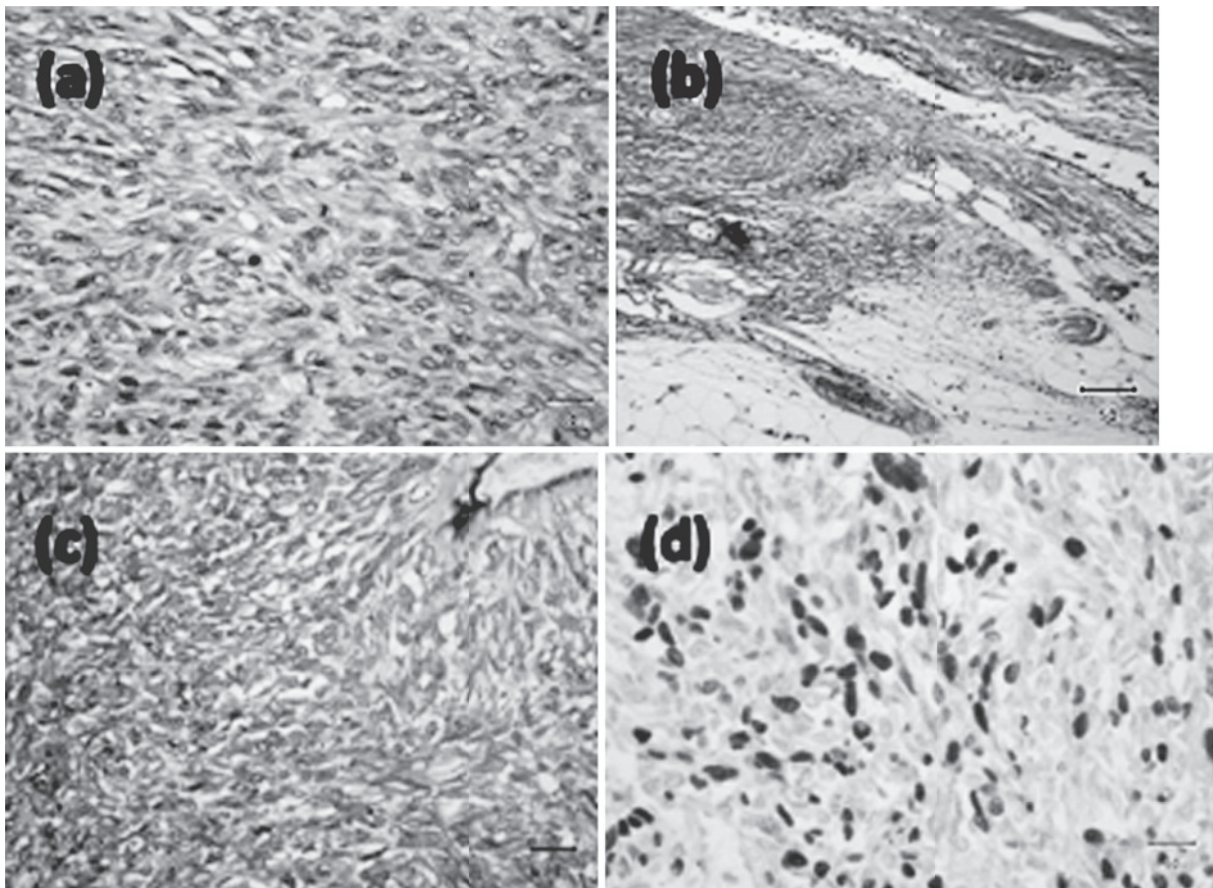


Figure 7. Microscopic findings in case 3 showed (a) proliferation of hypercellular spindle cells which had variously sized and round-to-oval-shaped nuclei, with collagen bands and necrosis ($\times 400$), (b) invasion into surrounding fat tissue ($\times 100$), (c) diffusely positive immunohistochemical staining for CD34 ($\times 400$), and (d) a MIB-1 labeling index of about 50% ($\times 400$).

考 察

SFTP は臓側胸膜直下の間葉系細胞を起源とする比較的稀な腫瘍である。¹ 約半数の症例では無症状であるが、有症状例では咳嗽・胸痛・呼吸困難を示すことが多く、特徴的な症状として、指先肥大・Hypertrophic Pulmonary Osteoarthropathy や低血糖発作も報告されている。²

78～88% が良性病変とされているが高悪性度のものもあり、特に無茎性の悪性病変とされたものでは再発率64% 死亡率30%で、その多くは24ヶ月以内の死亡であったとされている。³ Malignant SFTP と診断する基準として高細胞密度・核異型・4個/10 HPF以上の核分裂像・壊死の併存により評価する England's criteria が知られている。⁴ また、HiraokaらはKi-67 labeling indexと病理学的悪性度とが相関すると報告しており、⁵ MIB-1はこのKi-67の抗体のcloneの一つである。

SFTP が推測される場合、術前に悪性度を評価し症例に応じて肺切除や胸壁合併切除を含む十分なマージンを取った切除範囲を設定することが望ましいと考えられる。しかし、術前画像診断において、悪性度にかかわらずCTでは境界明瞭でときに分葉状の内部不均一な腫瘤として、² MRIではT2強調画像において高信号の腫瘤として⁶描出され、さらにFDG-PETではmalignant SFTPにおいてもほとんど異常集積率増加を認めない⁷とされている。また、CTガイド下穿刺などによる病理学的診断は成功率が低く勧められないとされている。²³

ところで、MRIの撮像方法の一つである拡散強調画像は水分子の可動性の違いによる生体内の組織的背景を反映しており、早期脳梗塞巣の描出に頻用される。この方法においては細胞外の水分子の可動性の差異が細胞密度の程度を表現しうるため、ある種の固形腫瘍においても一定の所見が得られることから、1990年代後半には腫瘍学の分野でも利用されはじめた。^{8,9} 2000年代前半からは乳腺腫瘍・前立腺腫瘍・婦人科腫瘍・尿路系腫瘍におけるMRI拡散強調画像の利用経験が盛んに報告されるようになり、⁹⁻¹¹ 2000年代後半には呼吸器領域においても検討され、肺癌の診断では疑陽性率の点でFDG-PETよりもMRI拡散強調画像のほうが優れるという報告もある¹²が、胸膜病変については検索し得た範囲では報告されていない。

我々は組織学的悪性度の異なる3例のSFTP切除例を経験し、既報と同様にCTやMRI T1・T2強調画像において明確な差異を呈さず、malignant SFTP症例のFDG-PET所見においても軽度の集積率増加しか認めなかった。しかし、MRI拡散強調画像による評価を追加したところ、低悪性度病変ではほぼ無信号だが高悪性度病変においては高信号を呈するという差異を認め、この所

見はEngland's criteriaにおける高細胞密度を表現していると推察された。このことから、SFTPが疑われる症例の悪性度の術前評価において、一般的に普及しているモダリティによる非侵襲的検査法であるMRI拡散強調画像が有用であると考えられた。

結 語

組織学的悪性度の異なるSFTPの3切除例を経験した。MRI拡散強調画像が術前の悪性度評価に有用である可能性が示唆された。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

REFERENCES

1. Suter M, Gebhard S, Boumghar M, Peloponios N, Genton CY. Localized fibrous tumours of the pleura: 15 new cases and review of the literature. *Eur J Cardiothorac Surg*. 1998;14:453-459.
2. Robinson LA. Solitary fibrous tumor of the pleura. *Cancer Control*. 2006;13:264-269.
3. de Perrot M, Fischer S, Bründler MA, Sekine Y, Keshavjee S. Solitary fibrous tumors of the pleura. *Ann Thorac Surg*. 2002;74:285-293.
4. England DM, Hochholzer L, McCarthy MJ. Localized benign and malignant fibrous tumors of the pleura. A clinicopathologic review of 223 cases. *Am J Surg Pathol*. 1989;13:640-658.
5. Hiraoka K, Morikawa T, Ohbuchi T, Katoh H. Solitary fibrous tumors of the pleura: clinicopathological and immunohistochemical examination. *Interact Cardiovasc Thorac Surg*. 2003;2:61-64.
6. 篠原真木子, 甲田英一, 小林成司, 植村 健, 向井万起男, 小林紘一. Malignant Solitary Fibrous Tumor of the Pleura—2 症例と文献的考察—. 日本医学放射線学会雑誌. 2000;60:428-433.
7. Kramer H, Pieterman RM, Slebos DJ, Timens W, Vaalburg W, Koëter GH, et al. PET for the evaluation of pleural thickening observed on CT. *J Nucl Med*. 2004;45:995-998.
8. Rowley HA, Grant PE, Roberts TP. Diffusion MR imaging. Theory and applications. *Neuroimaging Clin N Am*. 1999;9:343-361.
9. Charles-Edwards EM, deSouza NM. Diffusion-weighted magnetic resonance imaging and its application to cancer. *Cancer Imaging*. 2006;6:135-143.
10. Sinha S, Sinha U. Functional magnetic resonance of human breast tumors: diffusion and perfusion imaging. *Ann N Y Acad Sci*. 2002;980:95-115.
11. Squillaci E, Manenti G, Cova M, Di Roma M, Miano R, Palmieri G, et al. Correlation of diffusion-weighted MR imaging with cellularity of renal tumours. *Anticancer Res*. 2004;24:4175-4179.
12. Nomori H, Mori T, Ikeda K, Kawanaka K, Shiraiishi S, Katahira K, et al. Diffusion-weighted magnetic resonance imaging can be used in place of positron emission tomography for N staging of non-small cell lung cancer with fewer false-positive results. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2008;135:816-822.