

精巣セルトリ細胞腫の1例

—本邦症例のアンケート調査を加えて—

川村 正隆, 中澤 成晃, 上田 倫央
平井 利明, 岸川 英史, 西村 憲二
兵庫県立西宮病院泌尿器科

SERTOLI CELL TUMOR OF THE TESTIS : A CASE REPORT AND QUESTIONNAIRE SURVEY ON THE REPORTED CASES IN JAPAN

Masataka KAWAMURA, Shigeaki NAKAZAWA, Norichika UEDA,
Toshiaki HIRAI, Hidefumi KISHIKAWA and Kenji NISHIMURA
The Department of Urology, Hyogo Prefectural Nishinomiya Hospital

We report a case of Sertoli cell tumor of the testis. A 33-year-old man visited our hospital with the complaints of macroscopic hematuria and fever. The left testis was swollen on palpation. Serum levels of human chorionic gonadotropin- β and lactate dehydrogenase were not elevated, while α fetoprotein was slightly over the normal range. Ultrasonography showed a hypoechoic lesion in the left testis. There was no evidence of retroperitoneal lymph node enlargement or distant metastasis on computed tomography. A left orchietomy was performed under the diagnosis of left testicular tumor. The tumor, measuring 20 mm in size was histologically diagnosed as benign Sertoli cell tumor. No adjuvant therapy was performed. Neither recurrence nor evidence of metastasis has been detected for 6 months postoperatively.

(Hinyokika Kiyō 60 : 295-298, 2014)

Key words : Sertoli cell tumor, Testis

緒 言

精巣セルトリ細胞腫は精巣腫瘍のなかで稀な腫瘍である。今回われわれは精巣セルトリ細胞腫の1例を経験したので、若干の文献的考察と長期フォローに関するアンケート調査を加え報告する。

症 例

患者 : 33歳, 男性
主 訴 : 肉眼的血尿, 発熱
既往歴 : 特記事項なし
家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2012年11月, 上記主訴にて当科受診。左精巣に腫瘤を触知するが, 精巣上体炎の所見は認めなかった。発熱の原因は不明であったが尿路感染を疑い抗生剤の内服を開始したところ, 肉眼的血尿と発熱は速やかに改善した。改めて左精巣腫瘍の精査・加療目的で3日後に入院となった。

入院時現症 : 身長 167.8 cm, 体重 65.2 kg, 血圧 109/75 mmHg, 脈拍70/分, 整。表在リンパ節の腫脹はなく, 胸腹部に異常なし。外陰部は男性型で女性化乳房は認めず。左精巣に小指頭大の腫瘤を触知した。

血液検査所見 : WBC 17,100/ μ l, RBC 498 \times 10⁴/ μ l, Hb 15.2 g/dl, Plt 18.1 \times 10⁴/ μ l, CRP 5.38 mg/dl,

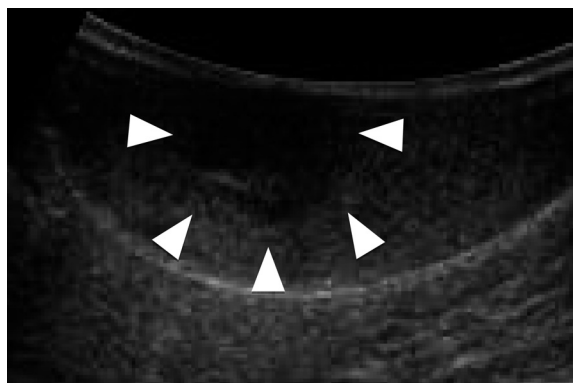


Fig. 1. Ultrasonography showed a low echoic mass in the right testis.

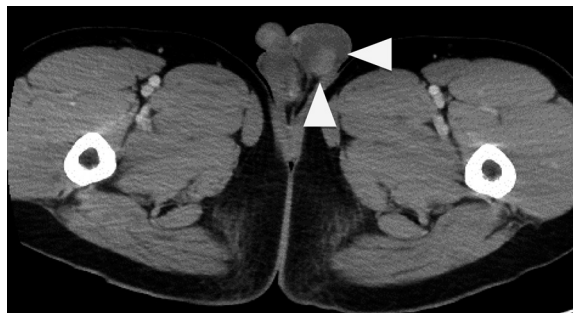


Fig. 2. Enhanced pelvic CT showed a high density mass in the right testis.

LDH 187 U/l, AFP 9.4 ng/ml (正常値: 1.3~8.5 ng/ml), HCG- β < 0.1 ng/ml (正常値: < 0.1 ng/ml).

尿沈渣所見: pH 6.5, 比重 1.019, 蛋白 -, 細菌 -, RBC 20~29/HF, WBC 30~49/HF.

画像所見: 超音波検査では左精巣内に長径 20 mm の低エコー腫瘤を認め (Fig. 1), 造影 CT 検査でも左精巣内に造影効果のある長径 20 mm の腫瘤を認めた (Fig. 2). 胸腹部には明らかな遠隔転移やリンパ節腫大は認めなかった.

経過: 左精巣腫瘍の診断で, 左高位精巣摘除術を施行した. 摘出標本では精巣内に長径 20 mm の充実性白色腫瘤を認めた. 出血壊死巣は認めなかった (Fig. 3).

病理組織学的所見: 腫瘍細胞は索状, 管腔形成性に増殖していた. 正常組織との境界は明瞭で脈管浸潤は認めなかった (Fig. 4). α FP, CD99, AE1/AE, カル

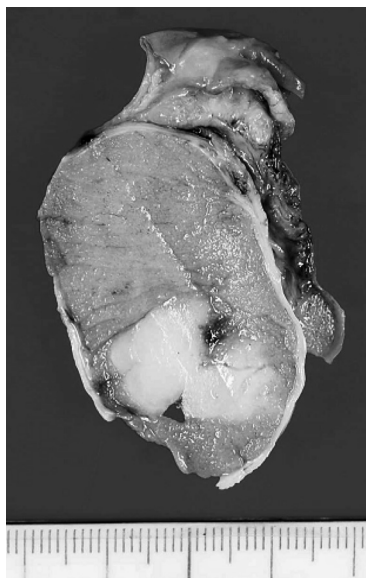


Fig. 3. Gross appearance of the right testis.

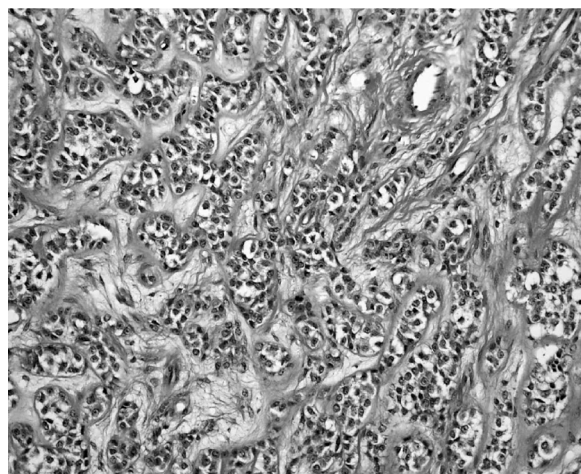


Fig. 4. Microscopic appearance of the Sertoli cell tumor (HE stain).

レチニン, HCG, inhibin α , CD30, c-kit による免疫染色を行ったが, すべて陰性であった.

以上より精巣セルトリ細胞腫, pT1N0M0 と診断した. 組織学的には悪性度に乏しく, 転移の所見も認めないため良性と診断し, 現在外来にて経過観察中であるが, 術後 6 カ月経過した現在再発, 転移は認めていない. 来院時に認めた白血球, 血清 CRP 値の上昇は抗生剤の投与に伴い低下した. 血清 AFP 値については術後も低下はみられなかった. 腹部の精査で異常を認めず, AFP-L3 分画比が < 0.5 と低いことから, 非特異的上昇と判断し経過観察としている.

考 察

精巣セルトリ細胞腫は精巣腫瘍のなかの性索/間質腫瘍に属し, 発生頻度は全精巣腫瘍の 1% 以下と稀な腫瘍である¹⁾.

精巣セルトリ細胞腫は特異的な腫瘍マーカー, 特徴的な画像所見がないことから, 術前の鑑別診断は困難であり, 多くの症例において高位精巣摘除術の摘出病理所見によって術後診断されている.

本腫瘍の約 10% は悪性であるとされ¹⁾, 病理組織学的に悪性とする参考基準として, 1) 腫瘍径 5 cm 以上, 2) 壊死, 出血巣の存在, 3) grade 2 または 3 の核異型像, 4) 5 個/10 hpf 以上の核分裂像, 5) 脈管浸潤像が提唱されている²⁾. この基準は悪性の指標として広く用いられているが, 確定的ではなく, 転移の存在が唯一の悪性の確定診断となる. ただ, 実際には病理学的所見のみで悪性と判断している報告例も多い. Young²⁾ らは経過観察可能であった精巣セルトリ細胞腫 16 例について病理組織学的検討を行っている. このうち初診時より転移を有した 4 例と経過観察中に転移が出現した 3 例の計 7 例の悪性セルトリ細胞腫のうち, 5 例が上記診断項目の 3 項目以上を, 他 2 例が 2 項目を満たしていた. それに対し, 経過観察中に転移を認めなかった 9 例では 1 例のみが 2 項目を満たしていた他は 1 項目以下であった.

術後フォローに関しては病理組織学的に良性と診断した場合, 術後補助療法は行わず経過観察を行う. 悪性と診断した場合, 術後補助療法を行うべきかどうかに関しては明確な治療基準はない. 後腹膜リンパ節郭清術を積極的に施行すべき³⁾との意見もあるが, 症例数が少なく今後の検討課題である. 再発, 転移を認めた場合には化学療法, 手術, 放射線療法のいずれかが選択されることになるが, 確立された治療法はなく, 予後はきわめて不良である^{4,5)}. 過去に化学療法や放射線療法が施行された症例もあるが, 1 例⁶⁾を除き奏効例はない. 病理組織学的悪性例に対しては, 10 年後の晩期再発の報告⁷⁾もあることから, 長期にわたる厳重な経過観察が必要となる.

Table 1. Reported cases of Sertoli cell tumor of the testis in Japan (N = 67)

年齢	42歳 (11カ月-79)
患側	
右	30例
左	31例
両側	1例
不明	5例
腫瘍径	3.4 cm (0.14-16.5)
病理組織学的悪性	18例 (26.9%)
術後転移	10例/18例 (55.6%)
転移部位	
後腹膜リンパ節	4例/10例 (40%)
肺	1例/10例 (10%)
不明	5例/10例 (50%)
転移時期	
RPLND により転移を確認	2例/10例 (20%)
1年以内	5例/10例 (50%)
不明	3例/10例 (30%)
死亡	5例/18例 (27.8%)

本邦では2003年に安藤ら⁸⁾が29例を集計しているが、われわれが調べた限り、その後の報告例と、特殊な組織亜型である large cell calcifying Sertoli cell tumor や sclerosing Sertoli cell tumor 例も併せ、66例の報告がある。自験例を含めた67例を集計した (Table 1)。

発症年齢は中央値42歳で、患側に左右差はみられなかった。腫瘍径の中央値は 3.4 cm であった。病理組織学的に悪性と診断された症例は18例 (26.9%) であり、従来の報告と比較し高率であった。前述の悪性の診断項目 5 項目中 2 項目を満たせば悪性と診断する傾向にあった。悪性18例中10例 (55.6%) で経過中に転移を認めている。うち 5 例が 1 年以内に転移を認めた。10例の転移例のうち 2 例では病理組織学的に悪性と判断した時点で積極的に後腹膜リンパ節廓清を施行し、後腹膜リンパ節への転移を確認していた。転移例のうち、5 例が死亡、1 例は術後 8 カ月生存の報告があり、4 例は不明であった。

精巣セルトリ細胞腫の長期フォローに関する報告は

Table 2. Questionnaire survey results of the hospitals Sertoli cell tumor of the testis reported in 1991-2012 (N = 44)

回答施設	32施設 (70.5%)			
回答症例	33例			
経過観察期間	4年 (6カ月-10年)			
病理組織	症例	最終観察時点		
		転移あり	転移なし	不明
悪性	5例	0例	1例	4例
良性	15例	0例	10例	5例
不明	13例	0例	10例	3例

これまでほとんどない。そこでわれわれは1991年以降に精巣セルトリ細胞腫の症例報告例のあった44施設にフォローに関するアンケート調査を依頼した (Table 2)。回答を頂けたのは32施設 (72.7%)、33例で、経過観察期間の中央値は 4 年間 (6 カ月~10年間) であった。病理組織学的に良性と診断し、経過観察中に転移を認めた症例は認めなかった。経過観察の方法については、多くの施設では精巣胚細胞腫瘍に準じて 3 カ月~1 年ごとに経過観察を行っていたが、病理組織学的良性例に対しては、CT 検査などの施行回数を少なくすることが可能ではないかと考える。自験例においては、病理組織学的に悪性とする参考基準はすべて満たしておらず、良性セルトリ細胞腫として経過観察予定である。

結 語

精巣セルトリ細胞腫の 1 例を経験した。症例の蓄積とともに、良悪性の病理組織学的診断基準の確立が重要であると考えられた。

謝 辞

本論文におけるアンケート調査に際し、以下の施設より貴重な情報を提供して頂きご協力を賜りました。ここに改めて深謝いたします。

網走厚生病院
一宮市立市民病院
大分医科大学
大阪赤十字病院
大阪船員保険病院
岩手医科大学医学部泌尿器科学教室
川崎医科大学医学部泌尿器科学教室
川崎市立井田病院
金沢医科大学病院
唐津赤十字病院
北見赤十字病院
京都市立病院
江南厚生病院
済生会高岡病院
埼玉社会保険病院
神鋼病院
仙台赤十字病院
田谷泌尿器科医院
千葉県がんセンター
中部労災病院
帝京大学医学部附属溝口病院
東京医科歯科大学医学部泌尿器科学教室
東京医科歯科大学市川総合病院
東京慈恵会医科大学医学部泌尿器科学教室
東京厚生年金病院

東京腎泌尿器センター大和病院
 東京大学医学部泌尿器科学教室
 東邦大学医療センター大橋病院
 長久保病院
 藤沢市民病院
 船橋市立医療センター
 山口大学医学部付属病院

文 献

- 1) Richie JP: Neoplasm of the testis. In: Campbell's Urology. Edited by Walsh PC, et al. 7th ed, pp 2440-2441, WB Saunders Company, 1998
- 2) Young RH, Koelliker DD and Scully RE: Sertoli cell tumor of the testis, not otherwise specified. *Am J Surg Pathol* **22**: 709-721, 1998
- 3) Campbell CM and Middleton AW Jr: Malignant gonadal stromal tumor: case report and review of the literature. *J Urol* **125**: 257-259, 1981
- 4) Kolon TF and Hochman HI: Malignant Sertoli cell tumor in a prepubescent boy. *J Urol* **158**: 608-609, 1997
- 5) Mene MP, Finkelstein LH, Manfrey SJ, et al.: Metastatic Sertoli cell carcinoma of the testis. *J Am Osteopath Assoc* **96**: 612-614, 1996
- 6) Athanassiou AE, Barbounis V, Dimitriadis M, et al.: Successful chemotherapy for disseminated testicular Sertoli cell tumor. *Br J Urol* **61**: 456-457, 1988
- 7) Adayener C, Akyol I, Sen B, et al.: Sertoli cell tumor of the testis: a case with late metastasis. *Int Urol Nephrol* **40**: 1005-1008, 2008
- 8) 安藤忠助, 江本昭雄, 田崎義久, ほか: セルトリ細胞腫の1例. *西日泌尿* **65**: 120-123, 2003

(Received on November 20, 2013)
 (Accepted on February 14, 2014)