

陰嚢内平滑筋肉腫の1例

日立総合病院泌尿器科 (医長: 石川 悟)

飯田 勝之, 遠藤 瑞木, 堤 雅一, 石川 悟

LEIOMYOSARCOMA OF THE SCROTUM: A CASE REPORT

Katsuyuki IIDA, Mizuki ENDO, Masakazu TSUTSUMI and Satoru ISHIKAWA

From the Department of Urology, Hitachi General Hospital

Leiomyosarcoma of the scrotum is a rare tumor. Up to 1999, only 29 cases have been reported in the literature worldwide. A 27-year-old man presented with a mass on the left side of the scrotum which had been painless and had gradually enlarged over the previous 10 years. During the following 3 months, however, it became painful and he was then referred to our hospital. Physical examination revealed a solid mass on the left side of the scrotum, measuring 7 cm in diameter, which was not adhering to the testis or to the vas deferens. The tumor was surgically resected. The histological examination confirmed the diagnosis of well differentiated leiomyosarcoma. Adjuvant therapy was considered unnecessary. The follow-up at 41 months revealed no local recurrence or distant metastasis.

(Acta Urol. Jpn. 46 : 919-921, 2000)

Key words: Leiomyosarcoma, Scrotum

緒 言

陰嚢内から発生する平滑筋肉腫は非常に稀であり、調べ得たかぎり本邦では現在までに11例の報告しかされていない。今回われわれは陰嚢内平滑筋肉腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 27歳, 男性

主訴: 有痛性陰嚢内腫瘍

家族歴 既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1985年頃から左陰嚢の腫大を自覚したが放置していた。1996年5月頃から左下腹部から陰嚢にかけての痛みが出現したため当科を受診した。初診時左陰嚢内に精巣とは別に7cm大, 弾性硬, 可動性良好の腫瘍を触知したため, 8月28日に精査, 加療目的にて入院した。

入院時現症: 身長170cm, 体重95kg. 血圧150/80mmHg, 脈拍80/分, 整. 胸腹部理学的所見に異常はなかった。陰嚢左側, 左精巣の頭側に直径7cm大, 八頭状で可動性良好な圧痛のない腫瘍を認めた。陰嚢皮膚にびらんなどの異常所見はなく, 両鼠径部を含め全身に触知可能なリンパ節の腫大は認めなかった。

入院時検査所見: 血液一般, 血液生化学, 尿所見に異常は見られず, CEA, AFP, HCG- β などの腫瘍マーカーも正常範囲内であった。

入院時画像所見: 超音波検査にて, 左精巣上体の頭側に精巣とは別に7~13mmの卵状のhypoechoic massが10個ほど集簇した腫瘍を認めた (Fig. 1)。石灰化や嚢胞形成は見られなかった。両側の精巣, 精巣上体に異常所見はなかった。また, 胸部X線では異常所見は見られなかった。

以上の検査所見から確定診断がつかず, 悪性疾患の可能性も否定できなかったため8月29日に陰嚢内腫瘍

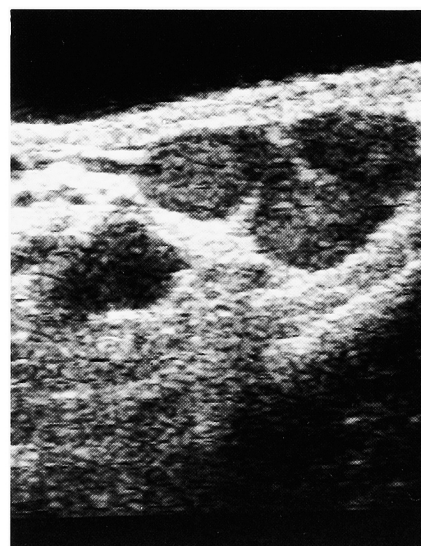


Fig. 1. Ultrasonogram showed a solid tumor in the left side of the scrotum, measuring 7 cm in diameter, which had multiple nodules.

摘出術を施行した。陰囊左側に切開を加えた。腫瘍は左精巣、精索との癒着はなく創外への露出、摘出は容易であった。腫瘍は不整形をした硬い白色結節が多数癒合しており血管に富んでいた。摘出腫瘍は7×6×3.5 cm, 50 gであった。

病理組織学的所見：紡錘型の細胞の cellularity が高く、一部は渦巻き状の配列を示し、免疫組織学的検査では抗 α -smooth muscle actin 抗体による染色が陽性であり高分化型平滑筋肉腫と診断された (Fig. 2)。

術後、特に問題なく回復し、8月31日に退院した。3年5カ月経過した現在外来にて経過観察中であるが再発、転移は見られていない。

考 察

平滑筋肉腫の発生部位は胃が最も多く、続いて大腸、小腸の順となり消化管のみで約70%を占めているが¹⁾、泌尿器科領域でも膀胱、腎、後腹膜発生を稀に経験する。陰囊とは Lowsley らによると肉様膜から精巣鞘膜までのことであり²⁾、陰囊内平滑筋肉腫は精巣、精巣上部、精索を除いた肉様膜、精巣挙筋、精巣鞘膜から発生した非常に稀な疾患である。調べ得たかぎりでは現在までに本邦では11例、世界においても28例の報告しかされておらず自験例が29例目である。尾関らの報告³⁾にて22例集計されているが、それ以前の集計漏れした2例と^{4,5)}、それ以降に報告された自験例を含む5例を追加し合計29例の集計を行った⁶⁻⁹⁾ (Table 1)。

診断は病理組織学的所見により、紡錘形をした腫瘍細胞あるいは blunt ended, cigar shaped と称される細長く鈍端である核が特徴的である。Stout らは悪性度の判定に核分裂像の数を用いており、200倍で5視野に1個以上の核分裂像が認められるものをほぼ悪性としている¹⁰⁾。一方で核分裂像の細胞数は再発、転移を予想する危険因子にはならないとの意見もあ

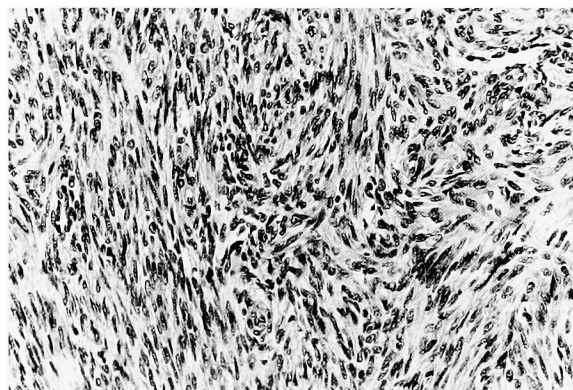


Fig. 2. Histological findings showed leiomyosarcoma composed of bundles of pleomorphic spindle cells with blunt-ended nuclei (H.E., ×250).

Table 1. Twenty-nine cases of leiomyosarcoma of the scrotum reported in the literature worldwide

平均発症年齢：58.6歳 (27~88歳)
主訴：無痛性腫大がほとんど。有痛性は6例。
腫瘍径：平均7.1 cm (1~50 cm)
治療方法：手術療法28例 (腫瘍のみ切除17例, 精巣を合併切除10例, 外陰部切除1例)
手術+化療5例, 手術+放療1例, 手術+化療+放療2例
放療のみ1例
遠隔転移：肺5例, リンパ節4例, 骨2例, 肝1例, 脳1例, 頸部皮下組織1例
予後：平均観察期間26.24カ月にて25例中癌死報告例は6例

り、それが示す意味に一致した見解はまだない。自験例では4~6視野に1個程度の少数の核分裂像が見られ悪性度は非常に低いと考えられた。

治療は手術療法が主体をなしている。癌死報告例は腫瘍摘除のみの群では16例中2例、精巣摘除術を加えた群では8例中2例であった。症例数が少ないこともありこの2群間に明らかな差は見られなかった。また、所属リンパ節郭清の必要性については未だ意見の分かれるところではある。軟部組織原発の肉腫のリンパ節転移は5%以下であり遠隔転移のほとんどは血行性転移と言われており¹¹⁾、陰囊内平滑筋肉腫の鼠径リンパ節転移は記載のある27例中3例で、術後新たに出現したものは1例のみであった。精巣への癒着や明らかな浸潤を示す所見がない場合は精巣摘出の追加、予防的な所属リンパ節郭清は必要ないと考えられた。自験例では精巣、精巣上部との癒着はなく容易に剝離可能であったため腫瘍摘出術のみとし、リンパ節郭清も行わなかった。

術後の補助療法または手術不能例に対する治療として化学療法や放射線療法を行う場合がある。化学療法は CYVADIC 療法 (cyclophosphamide, vincristine, adriamycin, dacarbazine) を使用することが多いがその有効率は低く20~30%程度である¹²⁾。また一般に肉腫の放射線感受性は低い。陰囊内原発においても手術療法に加え、これらを行っている症例もあるが有効とは言えない。

Ronchod らは平滑筋肉腫の予後について2年生存率は胃が40%、小腸が60%と比較的良好であるのに対し、後腹膜原発では16%と予後不良であると報告している¹³⁾。また、Wile らは平滑筋肉腫の予後不良因子として腫瘍径が5 cm 以上、核分裂像、根治手術ができたか否かをあげている¹⁴⁾。陰囊原発が後腹膜原発と比較して予後良好な原因として比較的発見されやすく早期に根治手術がされるため、また平均腫瘍径は7.1 cm であるが5 cm 以上の比較的大きな腫瘍であっても広範な切除を伴う根治手術が可能であるためと考えられた。

結 語

陰嚢内原発の平滑筋肉腫の1例を報告した。自験例を含め現在までに報告されている29例の集計をし文献的考察を行った。

本論文の要旨は第31回日本泌尿器科学会茨城地方会において発表した。

文 献

- 1) Salvadori B, Cusumano F, Delle donne V, et al.: Surgical treatment of 43 retroperitoneal sarcoma. *Eur J Surg Oncol* **12**: 29-33, 1986
- 2) Lowsley OS and Kiriwin TJ: Anatomy of the scrotum. In: *Clinical Urology*, Edited by Lowsley OS and Kiriwin TJ 3rd ed., pp. 174, The Williams and Wilkins Company, Baltimore, 1956
- 3) 尾関茂彦, 安田 満, 仲野正博, ほか: 陰嚢内平滑筋肉腫の1例. *泌尿紀要* **42**: 229-232, 1996
- 4) Mrinsky E, Yossiphov J and Messer G: Leiomyosarcoma scrotal. *J Urol (Pris)* **88**: 625-626, 1982
- 5) Moon TD, Sarma DP and Rodrriguez FD: Leiomyosarcoma of the scrotum. *J Am Acad Dermatol* **20**: 290-292, 1989
- 6) Koh KB, Joyce A and Boon AP: Leiomyosarcoma of scrotum. *Br J Urol* **73**: 717-718, 1994
- 7) 野口義久, 原 弘之, 涌井史典, ほか: 陰嚢肉様膜平滑筋肉腫. *臨皮* **49**: 13-17, 1995
- 8) 益田公彦, 荒木章伸, 植草利公, ほか: 陰嚢内平滑筋肉腫の1例. *病院病理* **15**: 133, 1998
- 9) 平井祥司, 古畑誠之, 神崎政裕, ほか: 陰嚢内に発生した平滑筋肉腫の1例. *西日泌尿* **61**: 756-758, 1999
- 10) Stout AP and Hill WT: Leiomyosarcoma of the superficial soft tissue. *Cancer* **11**: 844-854, 1958
- 11) Rosenberg SA and Glastine E: The management of local and regional soft-tissue sarcoma. In: *Cancer Principles and Practice of Oncology*. Edited by DeVita V, Hellerman S, and Rosenberg S (Eds), pp. 697-706, Lippincott Co, Philadelphia, 1985
- 12) Boh-Seng Y: Cyclophosphamide, vincristine, adriamycine, and DTIC (CYVADIC) combination chemotherapy for the treatment of advanced sarcoma. *Cancer Treat Rep* **64**: 93-98, 1980
- 13) Ronchod R: Smooth muscle tumors of the gastrointestinal tract and retroperitoneum. *Cancer* **39**: 255-262, 1977
- 14) Wile AG, Evans HL and Romsdahl MM: Leiomyosarcoma of soft tissue: a clinicopathologic study. *Cancer* **48**: 1222-1232, 1981

(Received on January 26, 2000)
(Accepted on July 9, 2000)