6年後に局所再発をきたした精索脂肪肉腫の1例

大垣市民病院泌尿器科 (副院長:磯貝和俊) 萩原 徳康*, 西田 泰幸**, 藤本 佳則, 磯貝 和俊

岐阜赤十字病院泌尿器科(部長:藤広 茂)

茂 藤広

岐阜大学医学部泌尿器科学教室(主任:出口 隆教授)

出口 隆

LOCAL RECURRENCE OF LIPOSARCOMA OF THE SPERMATIC CORD 6 YEARS AFTER ORCHIECTOMY: A CASE REPORT

Noriyasu Надімака, Yasuyuki Nishida, Yoshinori Fujimoto and Kazutoshi Isogai From the Department of Urology, Ogaki Municipal Hospital

Shigeru Fujihiro

From the Department of Urology, Gifu Red Cross Hospital

Takashi Deguchi

From the Department of Urology, Gifu University School of Medicine

A 78-year-old man had undergone high inguinal orchiectomy because of a tumor of the right spermatic cord. Pathological diagnosis was pleomorphic liposarcoma according to the WHO classification. Adjuvant therapy was not performed because of advanced age. Six years later, he consulted our hospital with the chief complaint of asymptomatic swelling of the right scrotal region. Local recurrence was suspected, and tumorectomy was performed. Pathological diagnosis was pleomorphic liposarcoma with cartilaginous metaplasia. A review of 6 cases of recurrent intrascrotal liposarcoma reported in Japan, including the present case, revealed that 5 cases recurred locally in the same lesion and were growing slowly. Therefore, we considered that intrascrotal liposarcoma should be resected as extensively as possible and observed for a long period.

(Acta Urol. Jpn. 48: 443-446, 2002)

Key words: Liposarcoma of the spermatic cord, Local recurrence

緒

精索、陰嚢内に発生する脂肪肉腫は比較的稀な疾患 であるが、さらに局所再発症例は非常に少ない。今回 われわれは精索腫瘍にて右高位精巣摘出術後6年経過 して同部位に局所再発した脂肪肉腫を経験したので若 干の文献的考察を加えて報告する.

> 症 例

患者:78歳,男性

主訴:右鼠径部の無痛性腫脹 家族歴:特記すべきことなし

既往歴:肺気腫, C型肝炎, 12年前胃潰瘍にて胃亜

全摘除術

* 現:岐阜赤十字病院泌尿器科 ** 現:下呂温泉病院泌尿器科

現病歴:1993年3月,右鼠径部に母指頭大の無痛性 腫脹を訴え当科を受診した. 精索腫瘍の診断にて右高 位精巣摘出術を施行した. 病理組織学的診断は多形型 脂肪肉腫であった. リンパ節転移, 遠隔転移を認め ず、高齢であることにより術後補助療法を行わず経過 観察とした. 術後1年間は通院したが、以後来院しな かった. その後1999年3月に再び同部に母指頭大の無 痛性腫脹に気づき, 6月に当科を受診した.

現症:右鼠径部より陰嚢にかけて以前の手術創を認 め, その直下に母指頭大, 弾性硬, 表面平滑, 可動性 のある腫瘤を触知した. 透光性, 圧痛は認められず, 右陰嚢内容にも異常は認めなかった. 胸腹部理学的所 見に異常は認めず、表在リンパ節は触知されなかっ

検査所見:血液一般,生化学的検査,尿所見に異常 は認められなかった. AFP, CEA, HCG, SCC な ど腫瘍マーカーはすべて正常範囲内であった.



Fig. 1. Pelvic CT revealed the low density mass in the right inguinal region.

画像所見:超音波検査では、腫瘍は 25 mm 大で全体に高エコーを呈し内部は不均一で所々石灰化を認めた、骨盤部 CT にて右鼠径部に境界明瞭で内部はやや low density,不均一な腫瘍を認めた (Fig. 1). 一部に石灰化像を認めた、腹部 CT も含めリンパ節腫大は認められなかった。

以上より脂肪肉腫局所再発を疑い, 1999年6月29日 に腰麻下に腫瘍摘出術を施行した.

手術所見:以前の手術創に沿って皮膚を切開した. 周囲と繊維性癒着を認めるものの剝離は容易であった. 鼠径管を開放し内鼠径部まで観察すると残存精索と思われる部分を同定するも肉眼的に浸潤は認められず,可及的に上方で合併切離した. 陰嚢内には異常は認められなかった. 腫瘍は被膜を伴い, 黄白色, 弾性硬であり,所々石様硬で石灰化を伴っていた.

病理学的所見:種々の量の脂肪を含んだ大小様々な細胞よりなり多形性に富んだ腫瘍細胞を認める.クロマチンに富んだ多核巨細胞を認め多形型脂肪肉腫と考えられた.一部に軟骨化生を認めた(Fig. 2).

6年前の初発時腫瘍病理学的所見は脂肪を比較的多く含み多形多彩な異型細胞を認めた. 胞体に一部硝子 滴を含む多核巨細胞を認め多形型脂肪肉腫と考えられ

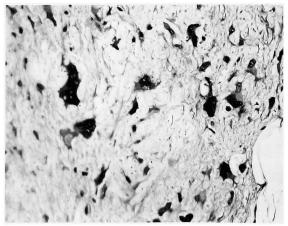


Fig. 2. Microscopic findings revealed pleomorphic liposarcoma.

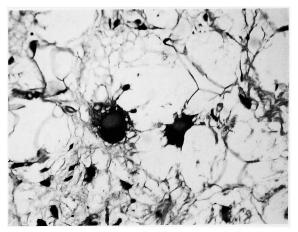


Fig. 3. Microscopic findings revealed pleomorphic liposarcoma with cartilaginous metaplasia.

た (Fig. 3).

術後経過:術後経過は良好であった. 転移など認められず,また高齢,有効な補助療法がないことより術後補助療法は行わず退院となった. 現在外来にて経過観察中であるが術後28カ月経過した時点で再発,転移は認められていない.

考察

脂肪肉腫は悪性軟部組織腫瘍の中では頻度が高く大腿部(54.6%),後腹膜症(32.7%)に好発し,鼠径部(5.5%),陰嚢内(3.6%)発生は比較的稀である¹⁾ 今までに精索および陰嚢内脂肪肉腫は本邦において68例報告²⁾されているが,初発治療終了後の経過観察中に再発をきたした症例は少なく,われわれが調べえた範囲内では自験例も含め6例^{3~5)}であった(Table 1). 再発症例の発生部位は精索部が5例,陰嚢内は1例であった.初発年齢は平均63.4歳であった.再発までの期間は平均5年(3カ月~8年)を要し,発育は比較的緩慢と考えられた.

脂肪肉腫の起源については、fibrolipoblast、poorly differentiated、mesenchymal cell、pericytes、perivascular cell、steam cell などから発生すると考えられている.脂肪肉腫の組織分類は一般に WHO の組織学的亜型分類が用いられ、分化型、粘液型、円形型、多形型、混合型に分類される.上原ら²⁾の精索陰嚢内脂肪肉腫68例の報告では分化型44例、粘液型10例と大部分がこの2型で占められていた.他臓器に発生する脂肪肉腫では、粘液型の再発が比較的多くみられているが、精索陰嚢内脂肪肉腫再発症例6例中粘液型の再発例は2例のみで特徴的な傾向はなかった.初発時と再発時の組織型が異なる症例、初発時に脂肪肉腫の診断を得ず、再発時に初発病理組織を再検討して脂肪肉腫と診断された報告もあり、その病理診断の複雑さ、困難さが示されている.脂肪肉腫における骨化に

										_
症例	報告者	部位	初発 年齢	初期治療	再発まで の期間		再発様式	再発時治療	初期組 織型	再発時組織型
1	酒本	精索	不明	高位精巢摘出 術,腫瘍摘除術	3 カ月		同局所	腫瘍摘除術, 放射線療法, 骨盤内リンパ節郭清	粘液型	粘液型
2	市木	陰嚢	59歳	高位 精巣 摘出 術,腫瘍摘除術	4年		同局所	腫瘍摘除術	不明	高分化型
3	森末	精索	76歳	高位精巣摘出術	8年		同側,陰 賽局所	腫瘍摘除術	高分化 型	高分化型
4	折居	精索	42歳	腫瘍摘除術	1 回目 2 回目	4年 3年	同局所	1回目 高位精巣摘出 術,腫瘍摘除術 2回目 腫瘍摘除術	混合型	1 回目 混合型 2 回目 混合型
5	三橋	精索	68歳	腫瘍摘除術	8年		同局所	腫瘍摘除術,化学療法	粘液型	高分化型
6	白験例	精索	72歳	喜位精単摘出術	6 年		同局所	腫瘍攐除術	多形刑	多形型

Table 1. Reported cases of recurred liposarcoma of the spermatic cord and intrascrotum in Japanese literature

ついてはわずかに脱分化型に認められた報告^{6,7)}があり、骨形成を誘導する物質として bone morphogenetic proteins (BMPs) の関与が報告⁸⁾されている. 精索陰嚢内脂肪肉腫において多形型の報告⁹⁾は自験例も含め2例で、再発例は自験例が第1例目であった.

精索陰嚢内脂肪肉腫の初期治療として、全例手術による腫瘍摘除術と高位精巣摘出術がそれぞれ単独あるいは併用されていた。再発症例における再発部位はすべて前回とほぼ同部位であることを考慮すると、初回手術時に十分な範囲の周囲組織の摘除が重要と考えられる。Vorstmanら¹⁰⁾も手術時に肉眼的に正常な脂肪組織と区別がつきにくく、可能なかぎり周囲組織を含めて切除することが再発を予防する上で重要と指摘している。

リンパ節郭清の要否については議論のあるところである。酒本らは高位精巣摘出術,腫瘍摘出術に加えリンパ節郭清を行うべきとし、Vorstmanら¹⁰⁾、Torosian MHら¹¹⁾は精索脂肪肉腫の多くは分化が良いものであり再発はほとんど局所のみのためリンパ節郭清の適応にはならないとしている。本邦における再発症例をみても、全例局所再発でありリンパ節転移は認めていないことより、少なくとも粘液型、高分化型についてはリンパ節郭清の必要はないものと考えられる。ただ、自験例は転移の可能性が高い多形型であるため、再発時にリンパ節転移はないものの、発育が緩慢なことを考えると、今後もリンパ節も含め長期にわたる経過観察が必要と考えられる。

術後補助療法について、上原ら²⁾は精索陰嚢脂肪肉腫68例のうち放射線療法は10例、化学療法は9例に施行されたと報告している。他臓器を含めた脂肪肉腫において、福間ら¹²⁾は補助療法の適応を組織型により考慮すべきとしている。早期に血行性転移の起こる円形細胞型、多形型で5cm以上のものはなんらかの術後補助療法を施行し、分化型、粘液型は局所手術で十分としている。放射線療法は血管に富んだ粘液型に有効¹³⁾との報告があるが、化学療法は vincristine、

cyclophosphamide などの多剤併用療法が試されているが有効性は低いようである.精索陰嚢内脂肪肉腫の場合,組織型はほとんど粘液型,分化型が占め,実際には補助療法の適応となる症例は少ないものと思われる.自験例では初回病理組織型が転移をきたす可能性が高い多形型であったが,高齢でもあり特に補助療法は行われなかった.しかし,その経過は他の組織型を有する再発症例と同様の局所再発であった.再発症例のうち1例のみ他の症例と比較して再発期間が短期間のため,放射線療法が追加されていた.

組織型は予後を最も左右する因子といわれており、 他臓器を含めた脂肪肉腫全体の5年生存率は分化型 85%,粘液型77%,円形型18%,多形型21%と報告されている.精索陰嚢内脂肪肉腫の予後が良好なのは分化型,粘液型が大部分を占め,早期発見が可能であり,臨床経過が緩慢なためと考えられる.しかし,なかには再々発症例の報告⁵⁾,組織型が粘液型であった若年者陰嚢内脂肪肉腫の死亡例の報告¹⁴⁾もある.自験例においては初回組織型が予後不良の多形型であり,今後も注意深い経過観察が必要と考えられた.

結 語

6年後に局所再発をきたした精索脂肪肉腫の1例を 経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- Evans HL: Liposarcoma. a study of 55 cases with a reassessment of its classification. Am J Surg Pathol 3: 507-523, 1979
- 上原慎也,市川孝治,山本理哉,ほか:陰嚢内精 索脂肪肉腫の1例. 臨必 52:945-947, 1998
- 3) 市木康久,平田祐司,藤山千里,ほか:陰嚢内脂肪腫の術後に同所発生した脂肪肉腫の1例.西日泌尿 **56**:1177-1179,1994
- 4) 森末浩一, 郷司和男, 及美昌司, ほか:精索脂肪腫の陰嚢内再発の1例. 西日泌尿 **57**: 1224-1226, 1995

- 5) 折居俊雄, 笹野伸昭, 佐藤 進, ほか:精索脂肪 肉腫の1例. 癌の臨 **11**:167-169, 1965
- 6) Nascimento AG, Kurtin PJ, Guillou L, et al.: Dedifferentiated liposarcoma; a report of nine cases with a peculiar neural-like whorling pattern associated with metaplastic bone formation. Am J Surg Pathol 22: 945-955, 1998
- McCormick D, Mentzel T, Beham A, et al.: Dedifferentiatiated liposarcoma; clinicopathologic analysis of 32 cases suggesting a better prognostic subgroup among pleomorphic sarcoma. Am J Surg Pathol 18: 1213-1223, 1994
- 8) Yoshikawa H, Rettig WJ, Lane JM, et al.: Immunohistochemical detection of bone morphogenetic proteins in bone and soft-tissue sarcoma. Cancer 74: 842-847, 1994
- 9) 野島道生,藤本宜正,京 昌弘,ほか:陰嚢内脂

- 肪肉腫の1例. 西日泌尿 52:1238-1241, 1990
- Vorstman B, Block NL and Politano VA: The management of spermatic cord liposarcomas. J Urol 131: 66-69, 1984
- 11) Torosian MH and Wein AJ: Liposarcoma of the spermatic cord: case report and review of literature.

 J Surg Oncol 34: 179-181, 1987
- 12) 福間久俊:悪性軟部腫瘍の補助化学療法. 癌と化療 **11**:1729-1735, 1984
- 13) Longbotham JH and Joyce RP: Retroperitoneal liposarcoma presenting as spermatic cord tumor. Urology 30: 276-280, 1987
- 14) 児島真一,佐竹一郎,田利清信,ほか:急速に進行した若年性陰嚢内脂肪肉腫. 臨泌 43:347-350,1989

Received on November 15, 2001 Accepted on March 25, 2002