

原発性精索悪性間葉腫の1例

福井医科大学泌尿器科学教室 (主任: 岡田謙一郎教授)

藤田 知洋, 秋野 裕信, 鈴木 裕志*

磯松 幸成, 岡田謙一郎

MALIGNANT MESENCHYMOMA OF THE SPERMATIC CORD: A CASE REPORT

Tomohiro Fujita, Hironobu Akino, Yuji Suzuki,

Yukishige Isomatsu and Kenichiro Okada

From the Department of Urology, Fukui Medical School

A 50-year-old man visited our clinic with the complaint of a painless, growing swelling in the left inguinal region. High inguinal orchiectomy including tumor resection was performed. The tumor originated in the spermatic cord without invading the epididymis or the testis. Histologically, the tumor consisted of osteosarcoma, leiomyosarcoma, and liposarcoma, which was compatible with the pathological finding of malignant mesenchymoma. Postoperatively, the patient received 2 courses of adjuvant chemotherapy according to the CYVADIC regimen. He is alive 12 months after surgery with no evidence of tumor recurrence or metastasis.

Malignant tumors of the spermatic cord are rare, especially malignant mesenchymoma. Our case is the 7th one so far reported in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 40: 165-168, 1994)

Key words: Malignant mesenchymoma, Sarcoma, Tumor of spermatic cord

緒 言

精索原発の悪性腫瘍は比較的稀な疾患であり、なかでも悪性間葉腫は特に稀な疾患である。今回われわれは精索原発の悪性間葉腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 50歳, 男性

主訴: 左鼠径部無痛性腫脹

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1989年10月頃より、左鼠径部の腫脹に気付いていたが、無症状なため放置していた。しかし1991年7月3日鼠径部腫瘍が徐々に増大したため当院受診し、同年8月2日左精索腫瘍の診断にて入院となる。

入院時現症: ほぼ左外鼠径輪の位置に約5cm大の弾性硬の腫瘍を認め、それは左精索と連続していた。圧痛および透光性はなかった。左精巣および精巣上体に異常はなかった。

入院時検査: 尿検査, 血液検査で異常はなく, AFP, HCG-β は正常値であった。

画像診断: CT では多彩な内部像 (不規則に enhance される軟部組織像, 脂肪像, 石灰化像) を認める辺縁平滑な限局性腫瘍を認めた (Fig. 1)。

また CT, 腹部超音波, 胸部単純写真からリンパ節転移および, 肺, 肝転移は認めなかった。

以上の結果より, 限局性の左精索腫瘍と診断し, 1991年8月7日手術を施行した。

術中所見: 腫瘍は精索を取り巻き一塊となり精索腫瘍と診断した。また術中迅速病理診断で脂肪肉腫であったため, 腫瘍周囲組織を十分に含めた左高位精巣摘除術を行った。

摘出標本: 腫瘍の大きさは5cm大で, 摘出重量は80gであった。精巣および精巣上体とは肉眼的に明らかに離れていた。腫瘍は弾性硬で, 剖面は黄白色であり, 一部骨組織部分を認めた (Fig. 2)。

病理組織学的所見: 腫瘍は組織学的に下記の3つの異なった組織成分から構成されていた。

① 筋肉腫: 2核の細胞, 核異型像を認めた (Fig.

* 現: 中村病院泌尿器科



Fig. 1. CT scan revealed heterogeneously enhanced mass in left inguinal region.

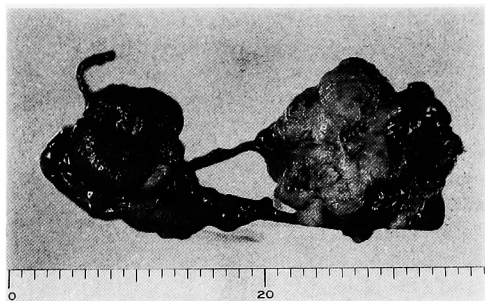


Fig. 2. Gross appearance of cut surface. The tumor (right side) originated in the spermatic cord without invading the epididymis and testis (left side).

3A).

②平滑筋肉腫：好酸性の胞体をもつ紡錘形の細胞から成り、また核分裂像も認められた (Fig. 3B).

③脂肪肉腫：類円形の核、核分裂像を認めた (Fig. 3C).

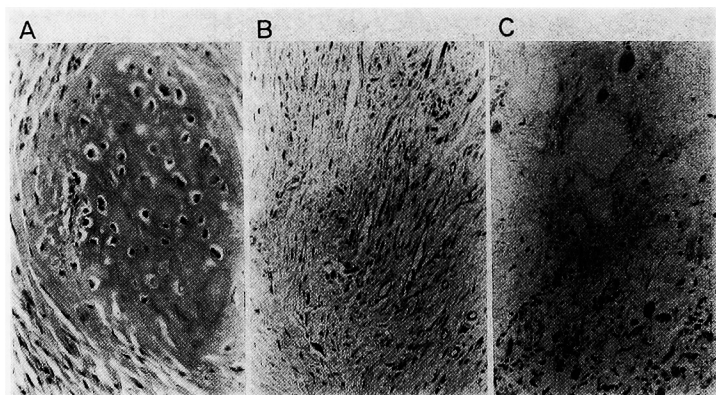


Fig. 3. Histopathological findings of the resected tumor
A: osteosarcoma B: leiomyosarcoma C: well differentiated liposarcoma H&E, Reduced from $\times 200$.

以上より2種類以上の間葉成分を有する悪性腫瘍であったため悪性間葉腫と診断した。

また周囲組織と、精索断端、精巣、精巣上体に明らかな腫瘍の浸潤を認めなかった。

術後補助療法：CYVADIC 療法を2コース施行した。副作用として脱毛および白血球減少 ($2,900/\mu\text{l}$) を認めたが、消化器症状、発熱などは軽度であった。

予後：術後1年経過し、再発、転移は認めていない。

考 察

悪性間葉腫とは、線維肉腫をのぞく、2種類以上の未熟な間葉成分を有する悪性腫瘍と定義されている¹⁾。またその好発部位は四肢などの軟部組織である²⁾。発生過程はまだ明確ではないが、未熟な間葉細胞が増殖の過程で複数の組織へ分化していくとする説が有力である^{3,4)}。

発生頻度について、古屋ら⁵⁾によれば軟部腫瘍691例中4例 (0.6%)、Krementz ら⁶⁾によれば400例中4例 (1%) と報告され、稀な腫瘍である。

一方、本邦における原発性精索悪性腫瘍の報告は大

Table 1. Malignant sarcomas of the spermatic cord in the Japanese literature (118 cases)

	No. Pts. (%)
Rhabdomyosarcoma	33 (28)
Liposarcoma	28 (24)
Leiomyosarcoma	14 (12)
Malignant fibrous histiocytoma	11 (9)
Fibrosarcoma	7 (6)
Reticulum cell sarcoma	2 (2)
Malignant mesenchymoma	7 (6)
Others	16 (14)

Table 2. Cases of malignant mesenchymoma of the spermatic cord in the Japanese literature

Author	Pt. Age	Therapy	Followup status (mos.)
Yoshida (1924)	59	Orchiectomy	unknown
Miyamoto (1938)	26	Tumor resection	Died of metastases (13)
Matuura et al (1961)	38	High orchiectomy	unknown
Matuda et al (1975)	76	High orchiectomy	No evidence of disease (12)
Betuniya et al (1976)	12	High orchiectomy	No evidence of disease (5)
Tajima et al (1977)	0.75	High orchiectomy, Chemotherapy and Radiotherapy	No evidence of disease (4)
Present case (1992)	50	High orchiectomy and Chemotherapy	No evidence of disease (12)

藪ら⁷⁾が1988年に81例に集計しているが、われわれは自験例とその後の症例37例を加え、118例を集めた (Table 1)。組織学的には横紋筋肉腫が28%と最も多く認められ、つぎは脂肪肉腫の24%であった。そして悪性間葉腫の報告は6%と少なく、われわれの調べたかぎりでは本症例は本邦7例目と考えられた。

Table 2 に本邦の精索悪性間葉腫の報告をまとめた⁸⁻¹³⁾。

年齢は9カ月から76歳とさまざまであった。

主訴は無痛性の腫瘍もしくは腫脹が7例中6例で、1例のみ圧痛のある腫瘍であった。患側は右4例、左3例であった。

治療に関しては、高位精巣摘除術、精巣摘除術もしくは腫瘍摘出術の手術療法が全例に行われていた。後腹膜リンパ節郭清が行われた症例はなかった。術後療法として、化学療法は本例を含め2例に、放射線療法は1例に行われていた。また予後に関しては術後1年で再発し死亡した症例が1例みられた。しかしその他の症例では術後の観察期間が短く、予後について十分な検討はできなかった。しかし精索以外の悪性間葉腫では、Nash ら¹⁴⁾は15歳までの症例42例で術後死亡2名を含め18例 (42.9%) が2年以内に死亡したと本疾患が予後不良であることを報告している。よって悪性間葉腫には何らかの術後補助療法が必要と考えられる。術後化学療法に関しては悪性間葉腫のみならず軟部悪性腫瘍に対する化学療法ははまだ確立されたものはないが、軟部肉腫に対しては1975年 Gottlieb ら¹⁵⁾が考案した CYVADIC 療法が有効との報告¹⁶⁻¹⁸⁾がなされている。今回のわれわれの症例は骨肉腫、平滑筋肉腫、脂肪肉腫で構成されており、CYVADIC 療法の有効率 (CR+PR) は順に27%, 68%, 60%と報告¹⁶⁾されている。骨肉腫に対する化学療法の有効率は高いが、悪性間葉腫に対する術後補助療法として

CYVADIC 療法を2コース施行し、まだ術後1年ではあるが再発を認めず、良好に経過している。

結 語

50歳の男子に発生した左精索原発の悪性間葉腫の1例を若干の文献的考察を加え報告した。本疾患の報告は少なく本例は本邦7例目と考えられた。

なお本論文の要旨は第357回日本泌尿器科学会北陸地方会にて発表した。

最後に病理組織所見につき御教示いただいた病理学第1講座の今村好章博士に深謝いたします。

文 献

- 1) 遠城寺宗知: 軟部腫瘍. 外科病理学, 石川栄世, 牛島 宏, 遠城寺宗知. 第一版, P. 1005-1076. 文光堂, 東京, 1987
- 2) Stout AP and Lattes R: Tumors of the soft tissues. In: Atlas of tumor pathology. Series 2, Fascicle 1, pp. 172-175, Armed Forces Institute of Pathology, Washington, 1967
- 3) Klima M, Smith M, Spjut HJ, et al.: Malignant mesenchymoma: case report with electron microscopic study. *Cancer* 36: 1086-1094, 1975
- 4) Enzinger FM and Sharon WW: Soft tissue tumors, pp. 958-960, The C.V. Mosby Co. St. Louis, Washington D.C., 1988
- 5) 古屋光太郎, 網野勝久: 悪性軟部腫瘍の分類とその治療. *癌と化療* 78: 513-521, 1979
- 6) Krementz ET and Muchmore JH: Soft tissue sarcomas: behavior and management. *Adv Surg* 16: 147-196, 1983
- 7) 大藪裕司, 鮫島 博, 中山 実, ほか: 精索脂肪肉腫の1例. *西日泌尿* 51: 141-144, 1989
- 8) 吉田美寿利: 精系ノ混合腫瘍及巨大結締織囊腫ニ就テ. *日外会誌* 25: 991-1003, 1924
- 9) 宮本輝夫: 精系ニ発生セン混合腫瘤ニ基ノ腹部転

- 移腫瘍に1例. 岡山医学会誌 50: 508-518, 1938
- 10) 松浦省三, 大熊謙彰: 精索混合腫瘍 (Chondromyxofibrosarcoma) について. 泌尿紀要 7: 521-527, 1961
- 11) 増田富士男, 佐藤 勝, 木戸 光, ほか: 精索肉腫 (Malignant mesenchymoma) の1例. 臨泌 29: 149-152, 1975
- 12) 別宮 徹, 井口正典, 坂口 洋, ほか: 原発性精索肉腫 (Undifferentiated Malignant Mesenchymal Tumor) の1例. 西日泌尿 38: 569-573, 1976
- 13) 田嶋政晴, 沢村良勝, 三浦一陽, ほか: 乳児精索肉腫 (Malignant mesenchymoma) の1例. 日泌尿会誌 68: 212, 1977
- 14) Nash A and Stout AP: Malignant mesenchymomas in children. Cancer 14: 524-533, 1961
- 15) Gottlieb JA, Baker LH, O'Bryan RM, et al.: Adriamycin (NSC 123127) used alone and in combination for soft tissue and bony sarcomas. Cancer Chemother Rep 6: 271-282, 1975
- 16) Yap MS, Burgess MA, Sinkovics JG, et al.: A 5-year experience with cyclophosphamide, vincristine adriamycin, DTIC (CYVADIC) chemotherapy in 169 adults with advanced soft tissue sarcoma (ASTS). Proc Am Soc Clin Oncol 22: 534, 1981
- 17) 松本誠一, 川口智義, 網野勝久, ほか: 軟部肉腫の化学療法 (CYVADIC 療法). 臨整外 20: 906-913, 1985
- 18) Rouesse JG, Friedman S, Sevin DM, et al.: Preoperative induction chemotherapy in the treatment of locally advanced soft tissue sarcomas. Cancer 60: 296-300, 1987
- (Received on July 16, 1993)
(Accepted on September 7, 1993)