

同胞内に発生した睾丸腫瘍

大阪大学医学部泌尿器科学教室（主任：園田孝夫教授）

野島 道生・中村 正広・園田 孝夫

関西電力病院泌尿器科（部長・片村永樹）

新井 永植・片村 永樹

CASE REPORT ON TESTICULAR TUMORS IN
NON-TWIN SIBLINGS

Michio NOJIMA, Masahiro NAKAMURA and Takao SONODA

*From the Department of Urology, Osaka University Hospital
(Director: Prof. T. Sonoda)*

Eishoku ARAI and Eiju KATAMURA

*From the Department of Urology, Kansai Electric Power Hospital
(Director: Dr. E. Katamura)*

A case report of testicular tumors in non-twin siblings is presented. A 42-year-old male was admitted to Kansai Electric Power Hospital with the complaint of swelling of the left scrotal contents. Left radical orchiectomy was performed with the diagnosis of a left testicular tumor. Histological examination revealed a seminoma of the left testis. Fifteen years later, his 43-year-old younger brother was admitted to Osaka University Hospital with the complaint of painless swelling of the left scrotal contents. Left radical orchiectomy was carried out with the diagnosis of a left testicular tumor. Histological examination showed a seminoma of the left testis. The former patient had a history of a scrotal trauma, but there was no history of orchitis or cryptorchism in these two siblings.

To our knowledge, there have been reported 44 sets of testicular tumors in siblings. Eleven of these sets appeared in twins, while the other 33 sets were described in non-twin siblings. We discussed the 45 cases including our case of testicular tumors in siblings.

Key words: Testicular tumor, Occurrence in non-twin siblings

緒 言 症 例

睾丸腫瘍は、全悪性腫瘍のなかでもその占める割合の少ない、比較的稀な疾患とされている。同胞内に睾丸腫瘍の発生をみた例はきわめて少なく、われわれの調べたかぎりでは現在までに一卵性双生児に11組、双子を除く同胞内に33組、合計44組が報告されているにすぎない。本邦においては、双子でない同胞間に発生したという報告が2例あるのみで、以下に述べる症例は本邦で3組目であると思われる。今回われわれは42歳と43歳の兄弟に発生した睾丸腫瘍を経験したので、これを報告するとともに、自験例を含めた同胞内に発生した睾丸腫瘍45症例につき、若干の考察を試みた。

症例1：兄，42歳男性，会社員

主訴：左陰囊内容の腫大

家族歴：同胞8人（うち男性3人）

既往歴：5歳の時腎炎で6カ月間の入院治療を受けた。停留睾丸の既往はない。

現病歴：1969年8月に左陰囊内容の無痛性腫大が出現したが放置していた。同年11月、野球のボールが左陰囊にあたり、左陰囊内容が急速に腫大、疼痛を伴った。近医を受診し、副睾丸炎の診断で投薬治療を受けたが、陰囊内容の腫大が軽減しないため、関西電力病院泌尿器科受診、左睾丸腫瘍の疑いで同年12月23日入

院となった。

入院時現症：体格大，栄養良好，眼瞼，眼球結膜に貧血，黄疸を認めず。頸部リンパ節の腫大なく，胸部，腹部ともに理学的には異常所見を認めない。右陰囊内容は正常所見であったが，左陰囊内容は 8×6.5 cm と腫大し，触診にて圧痛を認めず，弾性硬，明らかな透光性は認められなかった。

入院時検査成績：末血および血液生化学検査：血液型 B 型，Rh (+)，RBC $390 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，WBC $3,300/\text{mm}^3$ ，Hb 13.6 g/dl，Hct 41%，Plt $16 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Na 138 mEq/l，K 4.8 mEq/l，Cl 108 mEq/l，BUN 15 mg/dl，Cr 1.0 mg/dl，T.P. 6.4 g/dl，GOT 27 U/l，GPT 23 IU/l。

腎機能検査：PSP 15分値25%。

内分泌学的検査 17 KS 3.5 mg/day，17 OHCS 3.4 mg/day，妊娠反応 (-)。

検尿：異常を認めず。

X線検査所見：胸部X線像，排泄性尿路撮影，腹部大動脈造影，リンパ管造影にて異常所見は認められなかった。

以上の所見より左辜丸腫瘍と診断し，1969年12月27日，左高位除辜術を施行した。左辜丸は 125 g であった。

病理組織所見：大型円形の核を持った腫瘍細胞が充実性の胞巣を作り，間質にリンパ球の浸潤を伴っており，組織診断は seminoma であった (Fig. 1)。

術後経過：術後10日目より，左腸骨動脈，腹部大動脈リンパ節に対し，計 3,000 rad の放射線治療を施行した。以後経過は良好で，現在まで再発の徴候は認められていない。

症例 2：弟，43歳男性，会社員

主訴：左陰囊内容の無痛性腫大

家族歴：長兄 (症例 1) に辜丸腫瘍を認める。

既往歴：特記すべき事項なく，停留辜丸，陰部外傷

の既往はない

現病歴：1984年9月，左陰囊内容の無痛性腫大に気付いたが放置していた。同年10月末に腫大が増強したため，近医受診し，辜丸腫瘍の疑いにて同年11月14日阪大病院泌尿器科入院となった。

入院時現症：体格大，栄養良好，眼瞼，眼球結膜に貧血，黄疸を認めず。頸部リンパ節の腫大なく，胸部・腹部ともに理学的に異常所見は認められなかった。右陰囊内容に異常は認められなかったが，左陰囊内容は 6.5×3 cm と腫大し，触診にて圧痛を認めず，表面平滑，卵円形で弾性硬，透光性を認めなかった。

入院時検査成績：末血および血液生化学検査：血液型 B 型 Rh (+)，RBC $54 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，WBC $5,200/\text{mm}^3$ ，Hb 16.3 g/dl，Hct 45.7%，Plt $14.8 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Na 147 mEq/l，K 4.1 mEq/l，Cl 102 mEq/l，Ca 9.2 mg/dl，T.P. 6.8 g/dl，BUN 17 mg/dl，Cr 1.1 mg/dl，GOT 20 U/l，GPT 49 U/l，LDH 237 U/l，AFP 5 ng/ml 以下，CEA 2.1 ng/ml。

内分泌学的検査： β -HCG 2.41 mg/ml (0.26~1.20)，LH 27 mlU/ml，FSH 25.0 mlU/ml，progesterone 0.4 ng/ml，estradiol 68.4 pg/ml，testosterone 8.9 ng/ml。

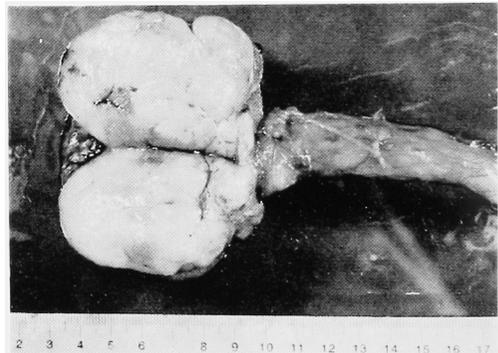


Fig. 2. Gross appearance of left testis: case 2.

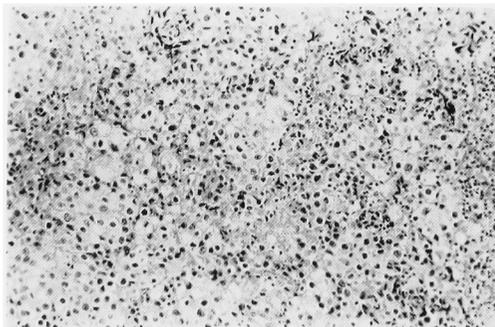


Fig. 1. Photomicrograph of tumor, showing seminoma: case 1.

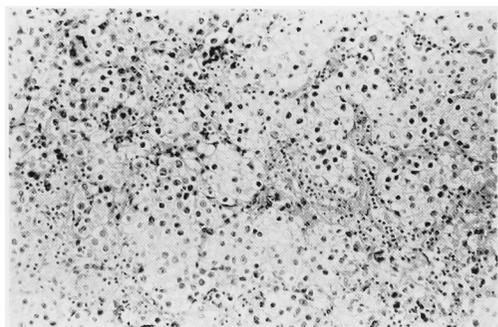


Fig. 3. Photomicrograph of tumor, showing seminoma: case 2.

Table 1. Testicular tumors in monozygotic twins¹⁾.

Authors	Ages	Side	Histology	
(1) Champlin	1980	24	rt	sarcoma
		81	rt	embryonal Ca
(2) Wells	1987	?	?	seminoma
		?	?	seminoma
(3) Domrich	1940	85	rt	embryonal Ca
		89	rt	embryonal Ca
(4) Salm & Adlington	1962	40	rt	seminoma
		44	lt	seminoma
(5) Stewart & Bagshaw	1965	37	rt	seminoma
		37	lt	embryonal Ca
(6) Villani	1967	18	lt	teratoma
		25	rt	teratocarcinoma
(7) Levey & Grabstald	1975	23	rt	embryonal Ca
		23	lt	embryonal Ca
(8) Wilbur et al	1979	38	lt	embryonal Ca with seminoma
		38	bilat	rt seminoma lt embryonal Ca with seminoma
(9) Rioja et al	1979	23	lt	embryonal Ca
		25	rt	teratocarcinoma
(10) Peulen	1980	45	rt	seminoma
		46	lt	seminoma
(11) Martin & Dane	1980	45	rt	embryonal Ca
		45	rt	seminoma

検尿：異常を認めず。

X線検査所見：胸部X線像，排泄性尿路撮影，腹部CTにて異常所見を認めず。

陰囊超音波検査所見：左辜丸は 6.3×3.9 cm，内部echo は不均一であった。右辜丸に異常所見は認められなかった。

以上の所見より左辜丸腫瘍と診断し，1984年11月16日，左高位除辜術を施行した。

摘除標本：左辜丸は 6.5×4.3 cm，65 g で割を加うるに辜丸はほぼ腫瘍で置換されており，正常辜丸様の部分は周辺部に圧排されていた (Fig. 2)。腫瘍部分の中心は壊死性であったが，腫瘍はほぼ均一な充実性の組織よりなり，出血巣は認められなかった。

病理組織所見：腫瘍細胞は大型円形の核と明るい豊富な原形質を持ち，組織診断は seminoma であった (Fig. 3)。

術後経過：同年12月3日より左腸骨動脈および腹部大動脈リンパ節に対し，計 3,000 rad の放射線治療を施行した。血中 β -HCG は術後6日目には 1.35 mg/ml と低下し，以後現在まで β -HCG の上昇もなく経過は良好である。

考 察

辜丸腫瘍の家族発生はきわめて稀であるとされていたが，近年その報告例が増加している。しかしわれわれの調べた範囲では同胞内の発生は，双子例に11組 (Table 1)，双子以外の同胞内で33組が報告されているにすぎない (Table 2)。計44組のうち本邦では，これまでに双子以外の同胞に2組が報告されており，は自験例3組目にあたる (Table 3)。

以下，自験を含めた non-twin siblings に発生した辜丸腫瘍34組における発症年齢，罹患側，組織型について検討し，加えて twin の場合との比較を試みた。

発症年齢頻度については，30歳代が最も多く，ついで20歳代，40歳代と，一般の辜丸腫瘍の分布¹¹⁻¹⁴⁾と同様の傾向が認められた (Fig. 4)。各々の症例での兄弟の発症時年齢の差をみると，monozygotic twin で平均2.3年，non-twin siblings で7.1年と twinの方が発症年齢が近接していた。

罹患側については右33例，左30例で，同胞間で罹患側の一致をみたものは monozygotic twin で10組中

Table 2. Testicular tumors in non-twin siblings.

Authors	Ages	Side	Histology	Reference
(1) Raven	1984	19 rt	?	2)
		38 lt	seminoma	
(2) Lownes & Lebermen	1939	32 rt	seminoma	2)
		53 rt	teratoma	
(3) Willie	1958	31 ?	teratoma	2)
		88 rt	seminoma	
(4) Hutter	1967	32 lt	teratocarcinoma with embryonal Ca	2)
		31 rt	seminoma	
(5) Beltrami & Luppi	1968	36 ?	choriocarcinoma	2)
		44 ?	embryonal Ca	
(6) Nordoholt	1971	37 rt	teratoma	6)
		26 lt	teratoma	
(7) Meyers Jr & Macpherson	1972	20 lt	teratocarcinoma	2)
		25 lt	teratoma with embryonal Ca	
(8) Young & Bohne	1972	37 lt	seminoma	2)
		45 rt	seminoma	
(9) Gulley	1974	31 lt	embryonal Ca	
		34 rt	embryonal Ca with seminoma	
		27 rt	seminoma	2)
		40 ?	? (48♂ starting to have troubles with testicles ♀ cancer of female organs)	
(10) Kleep	1975	49 lt	embryonal Ca	2)
		52 lt	embryonal Ca	
(11) Lefevre	1975	19 <rt	teratocarcinoma	3)
		lt	teratocarcinoma	
		21 lt	teratocarcinoma	
(12) Adeeb & Greco	1975	28 lt	teratocarcinoma	4)
		35 rt	seminoma	
(13) Gallagher	1976	7mos lt	malignant lymphoma	5)
		3mos rt	malignant lymphoma	
(14) Mikuliček	1976	18 lt	choriocarcinoma	2)
		27 rt	seminoma	
		32 rt	teratocarcinoma	
(15) Kademian & Coldwell	1976	29 lt	seminoma	2)
		35 lt	seminoma	
(16) 相模・梶尾 (JAPAN)	1976	44 rt	seminoma	6)
		41 rt	seminoma	
(17) Ghosh	1976(case 1)	31 lt	embryonal Ca	2)
		23 rt	seminoma	
(18) Ghosh	(cases 2)	35 lt	teratocarcinoma	2)
		24 lt	seminoma	
(19) Yashin & Mikháilov	1977	35 rt	seminoma	7)
		32 lt	seminoma	
(20) Pervés & Reboul	1977	28 rt	seminoma	7)
		31 lt	seminoma	
(21) Tan & Chua	1977	32 rt	seminoma	7)
		48 rt	seminoma	
(22) Thomson & Sinclair	1977	29 lt	malignant teratoma	2)
		27 lt	malignant teratoma	
(23) Lowe & Akgun	1979	44 rt	embryonal Ca with seminoma	7)
		23 rt	teratocarcinoma	
(24) Madduri	1979	48 rt	embryonal Ca with seminoma	1)
		22 rt	teratocarcinoma	
(25) Gawande	1980	41 rt	seminoma	1)
		32 rt	seminoma	
(26) 土居・青山ら (JAPAN)	1981	1yr 8mos rt	yolk sac tumor	7)
		2yrs 7mos rt	yolk sac tumor	
(27) Wobbes et al	1981	27 lt	embryonal Ca	17)
		24 rt	embryonal Ca with seminoma	
(28) Peschel et al	1981	23 lt	seminoma, embryonal Ca, teratoma	8)
		25 lt	seminoma	
(29) Finan	1981	24 lt	malignant teratoma	1)
		26 rt	seminoma	
(30) Abratt	1982	24 bil	malignant teratoma	1)
		36 rt	seminoma	
(31) Rošni et al	1983	18 lt	seminoma	9)
		14 bil	seminoma	
		25 bil	embryonal Ca	
		21 ?	seminoma	
(32) Mills et al	1984	24 rt	seminoma	2)
		30 ?	seminoma	
(33) Anderson et al	1984	33 rt	seminoma	10)
		31 lt	seminoma	
(34) Present cases		42 lt	seminoma	
		43 lt	seminoma	

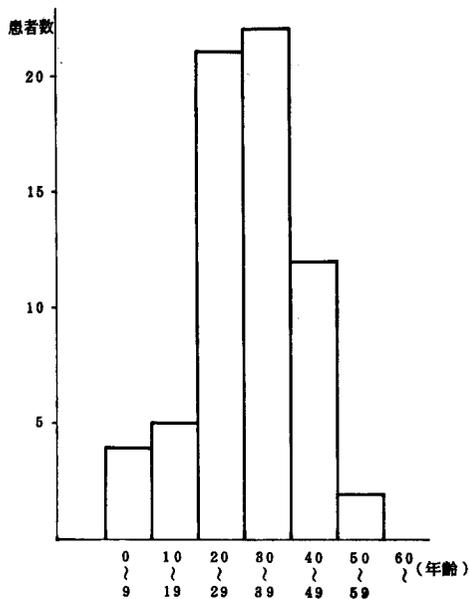


Fig. 4. Number of patients with testicular tumors in non-twin siblings according to age.

Table 3. 本邦における睾丸腫瘍の同胞内発生の例.

Authors	Ages	Side	Histology
相模ら 1976	44	rt	seminoma
	41	rt	seminoma
土居ら 1981	1	rt	yolk sac tumor
	2	rt	yolk sac tumor
Present cases	42	lt	seminoma
	48	lt	seminoma

Table 4. 双子以外の同胞に発生した睾丸腫瘍の組織型別分類.

seminoma	36
teratoma	4
teratocarcinoma	14
embryonal carcinoma	8
yolk sac tumor	2
malignant lymphoma	2
choriocarcinoma	2
mixed type	7

(不明の2睾丸を除く75睾丸)

2組(20%), non-twin siblings で28組中14組(50%)であった。ただし monozygotic twin に関しては、それぞれの個体が mirror image に作られているという考え方もあるので、単純な比較は困難であると思われる。すなわち、腫瘍の発生を例にとると、mo-

nozygotic twin 間ではそれぞれの反対側に発生をみるとする考え方である⁶⁾。

組織型のわかっている71症例75睾丸について分類してみると、seminoma が36睾丸、teratocarcinoma が14睾丸、embryonal carcinoma が8睾丸と、一般の睾丸腫瘍の分布^{11,14)}と大差がなかった (Table 4)。また、組織型の一致している組み合わせは自験例を含めて non-twin siblings で16組53%, twin で5組45%であった。

一般の睾丸腫瘍の発生頻度は、男子10万人あたり2.1人から2.3人であるといわれている⁹⁾。発生頻度について、兄弟の組み合わせを考慮したうえでの比較はきわめて困難であると考えられるが、双生児間の発生頻度について細かくみると、双生児間での発生が現在まで11組存在し、これらのすべてが monozygotic twin であり、これまで dizygotic twin の報告がない。一方、monozygotic twin の出度頻度は約0.4%で、これは dizygotic twin の出産頻度0.8%の1/2であり、男女の出産率がほぼ等しいと考えると、monozygotic twin は dizygotic twin に比し、睾丸腫瘍を twin 間で発症する頻度が非常に高いと考えられる。このほか、オランダ系で一般の70倍の頻度で睾丸腫瘍が発生した家系が知られていること¹⁵⁾、人種間で睾丸腫瘍の発生頻度に差があり、白人、黄色人種、黒人の順に頻度が高いこと¹⁶⁾、non-twin siblings のうちで HLA が一致している症例が発見されていること¹⁷⁾、睾丸腫瘍と染色体異常が合併したという報告^{18,19)}があることなどより、睾丸腫瘍の発生に遺伝的要素が関与している可能性が示唆される。

結 語

42歳男性と43歳男性の同胞に発生した睾丸腫瘍を報告した。

本稿の要旨は第111回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Martin WM and Dane TE: Testicular germ cell tumors in monozygotic twins: Case report and review of the literature. *J Urol* 134: 765~767, 1985
- 2) Mills PK, Newell GR and Johnson DE: Familial patterns of testicular cancer. *Urol* 24: 1~7, 1984
- 3) Levevre RE, Levin HS, Banowsky LH, Straffon RA, Stewart BH and Hewitt CB: Bilateral testicular tumors of germ cell origin.

- J Urol 114: 556~559, 1975
- 4) Adeeb NE and Greco PA: Malignant testicular tumors in non-twin brothers. Urol 6: 98~100, 1975
 - 5) Gallagher BLS and Hashmat AI: Malignant testicular lymphoma in brothers. Brit J Urol 48: 410, 1976
 - 6) 相模浩二・梶尾克彦: 兄弟にみられた睾丸腫瘍. 西日泌尿 38: 900~905, 1976
 - 7) 土居 治・青山興司・高田佳輝・小野田康雄・田中嶺太郎・村上元正・戸谷拓二・渡辺泰宏: 小児睾丸悪性腫瘍の兄弟例. 日小外会誌 17: 1291~1298, 1981
 - 8) Peschel RE, Schitt M and Knowl AH: Testicular tumors in 2 families. J Urol 125: 432~433, 1981
 - 9) Roshni K, Netzloff ML and Texera C: Familial cryptorchidism and testicular tumors in non twin brothers. Ann Clin Lab Sci 13: 327~331, 1983
 - 10) Anderson KC, Li FP and Marchetto DJ: Dizygotic twinning, cryptorchism, and seminoma in a sibship. Cancer 53: 374~376, 1984
 - 11) Culp DA: Testicular tumors 40 years experience. J Urol 110: 548~553, 1973
 - 12) 吉田 修・桐山喬夫・宮川美栄子・辻 一郎・平野哲夫・折笠精一・星 宣次・新島端夫・河辺香月・町田豊平・三木 誠・大田黒和生・上田公介・西浦常雄・栗山 学・渡辺 決・三品輝男・宮崎 重・高崎 登・園田孝夫・長船匡男・石神襲次・守殿貞夫・酒徳治三郎・多嘉良稔・百瀬俊郎・上田豊史 1970年代の日本人睾丸(精巣)腫瘍の臨床統計. 泌尿紀要 31: 337~356, 1985
 - 13) Barzell GEI and Whitmore WF Jr: Neoplasms of the testis. Campbell's Urol vol 2, pp1125~1169, W.B. Saunders Co. Philadelphia, London, Toronto, 1979
 - 14) Mostofi FK: Testicular tumors, epidemiologic, etiologic and pathologic features. Cancer 32: 1186~1201, 1973
 - 15) Lynch HT, Krush AJ, Mulcahy GM and Reed WB: Familial occurrence of a variety of premalignant disease and uncommon malignant neoplasms. Cancer 33: 1474~1479, 1974
 - 16) Schottenfeld D and Warshauer ME: Cancer by tissue of origin: Testis. Schottenfeld D, Franmeni JF Jr, eds. Cancer Epidemiology and Prevention. Philadelphia WB Saunders: 947~957, 1982
 - 17) Wobbes TH, Hoekstra HJ, Sleyter D TH and Schraffordt Tumors of the testis in two brothers: A case report. J Surg Oncol 17: 135~137, 1981
 - 18) Atkin NB and Barker MC: i (12p): Specific chromosomal marker in seminoma and malignant teratoma of the testis? Cancer Genet Cytogenet 10: 199~204, 1983
 - 19) Gibas Z, Prout GR Jr and Sandberg A: Malignant teratoma of the testis with a isochromosome No 12, i(12p), as the sole structural cytogenic abnormality. J Urol 131: 762~763, 1984

(1986年8月18日受付)