

精索平滑筋肉腫の1例

帝京大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 梅田 隆教授)

吉井 隆, 芦沢 好夫, 針生 恭一, 佐藤 ミカ

岡野 由典, 上山 裕, 佐藤 聡, 清水 弘文

友政 宏, 飯泉 達夫, 梅田 隆

A CASE OF LEIOMYOSARCOMA OF THE SPERMATIC CORD

Takashi YOSHII, Yoshio ASHIZAWA, Kyouichi HARIU, Mika SATOH,
Yoshinori OKANA, Yutaka KAMIYAMA, Satoshi SATOH, Hirofumi SHIMIZU,
Hiroshi TOMOMASA, Tatsuo IIZUMI and Takashi UMEDA

From the Department of Urology, Teikyo University School of Medicine

A 44-year-old male was referred to our hospital for further treatment of lung and adrenal metastases from leiomyosarcoma occurring in the left spermatic cord. He had undergone high orchiectomy 5 months before, but no adjuvant therapy was done. Although systemic CYVADIC therapy (cyclophosphamide, vincristine, doxorubicin hydrochloride, dacarbazine) was performed in our hospital, he died of metastatic disease 10 months after the initial therapy. Leiomyosarcoma arising in the spermatic cord is a rare entity. We present a case of leiomyosarcoma of the spermatic cord, and to our knowledge, this is the 23rd case reported in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 48 : 225-227, 2002)

Key words: Leiomyosarcoma, Spermatic cord

緒 言

陰嚢内腫瘍は大部分が精巣腫瘍であり, 精巣以外の悪性腫瘍は稀な疾患である. なかでも精索に発生した平滑筋肉腫はきわめて稀で, 本邦では現在までに22例が報告されているに過ぎない. われわれは今回左精索に発生した平滑筋肉腫の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: 44歳, 男性

主訴: 左鼠径部腫瘍

家族歴 既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1999年6月頃より左無痛性鼠径部腫瘍を自覚するようになり, 同年7月他院を受診. 陰嚢内悪性腫瘍の診断で高位精巣摘除術を施行された. 病理組織学的検査結果は精索発生の平滑筋肉腫であった. 補助療法は行わず外来にて経過を見ていたが, 肺転移, 副腎転移が出現し, 精査加療目的にて1999年12月当科を紹介され受診した. 当初は入院を拒否していたが, 2000年2月に血痰が出現したことから, 本人の希望あり3月に入院した.

入院時現症: 身長 166 cm, 体重 48 kg, 体格中等度. 胸腹部理学所見に異常を認めず, 表在リンパ節の腫脹も認められなかった.

入院時検査所見: 血液検査では RBC $314 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 8.0 g/dl と貧血を認め, また WBC $104,700/\text{mm}^3$ と成熟好中球を主体とした高度の白血球増多が認められた. 血清生化学検査では CRP 17.58 mg/dl と上昇している以外は正常範囲内であった. なお血清 G-CSF 活性は 600 pg/ml (正常値 30 pg/ml 以下) と上昇していた.

画像所見: 胸部単純写真で肺転移像が, 腹部 CT (Fig. 1) では両側副腎転移像が認められた.

入院後経過: 一般的な軟部肉腫に準じて CYVADIC 療法 (cyclophosphamide, vincristine, doxorubicin, dacarbazine) を施行した.

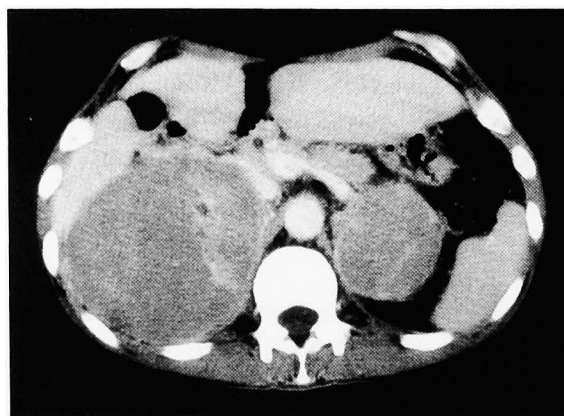


Fig. 1. Upper abdominal CT scan reveals bilateral adrenal metastases.

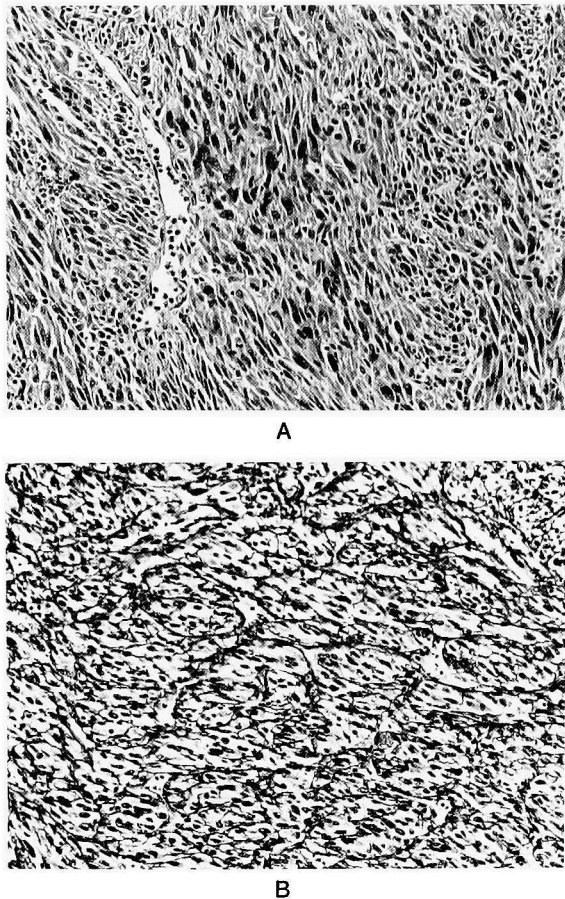


Fig. 2. Microscopic appearance of the metastatic lesion. A: Atypical mitotic figures in spindle cells and cigar-shaped nuclei are seen (HE, $\times 200$). B: Boxing is diffusely seen (Silver stain, $\times 200$).

bicin hydrochloride, dacarbazine) を1クール施行したが、効果なく2000年5月死亡した。

剖検所見：大網、腸間膜リンパ節、後腹膜リンパ節、両側副腎、両肺への転移が認められた。

病理組織学的所見：転移組織の病理所見は、HE染色では、紡錘形の腫瘍細胞が増殖していた。mitosisが豊富で、核の大小不同や巨核球が見られた。cigar-shaped nucleusを有し、細胞質は好酸性、線維性であった。PAS染色ではグリコーゲン陰性、PTAH染色では横紋は見られず、鍍銀染色で腫瘍細胞を取り囲むような箱入像(boxing)が認められたことなどから平滑筋肉腫と診断された(Fig. 2)。なおこの病理所見は原発巣の組織所見と一致していた。

考 察

精巣以外に発生する陰嚢内の悪性腫瘍は稀な疾患である。特に平滑筋肉腫は、成人男性の精索に発生する肉腫の中で、約10%を占めるにすぎない¹⁾。本邦では、宗ら²⁾の報告に始まり、高羽ら³⁾が18例を報告している。その後は4例⁴⁻⁷⁾が報告されており自験例は

23例目に相当する。年齢は1歳から79歳までで、40歳代が7例ともっとも多く、主訴はほとんどの症例で、無痛性陰嚢内腫瘍あるいは鼠径部腫瘍であった。精索発生平滑筋肉腫の場合、原発巣に対する外科的治療を高位精巣摘除術とすることに論は待たないが、1) 局所再発、2) 血行性転移、3) リンパ行性転移などの問題が存在する。補助療法としての放射線療法について、Catonら⁸⁾は傍精巣肉腫14例中、放射線療法を併用した6例では局所再発が認められなかったと報告している。またFagundesら⁹⁾は平滑筋肉腫を含む精索肉腫18例中、9例には外科的治療のみで、残りの9例には放射線療法を併用した。その結果放射線治療併用群の5年局所非再発率が100%であるのに対し、外科的治療群では63%と有意差を認めたと報告している。このような報告から、精索発生平滑筋肉腫の場合、外科的切除に放射線療法を併用することは、局所のコントロールについては有用な方法であると考ええる。一方、化学療法の有効性については、横紋筋肉腫を除いて¹⁰⁾、未だ見解が得られていないのが現状である¹¹⁻¹³⁾。われわれの症例はCYVADIC療法を施行したがまったく効果は認められなかった。有効な薬剤の開発や、多剤併用療法の確立が待たれるところである。

なお本症例はG-CSF産生腫瘍の可能性があり、原発巣ならびに転移巣を抗G-CSF抗体により免疫染色を行なったが、両者とも染色されなかった。このことから本症例における白血球増加は、転移の進行が急速に進み、反応性に全身においてG-CSFの産生が著しく高まったための類白血病反応と考えられた。

結 語

1. 44歳、男性、精索に発生した平滑筋肉腫の1例を経験した。
2. 本症例は本邦報告23例目に相当する。

文 献

- 1) Puts JJ, Boerema JB and Haelst UG: Leiomyosarcoma of spermatic cord. *Urology* **23**: 187-193, 1984
- 2) 宗 謙治, 矢部忠孝, 難波幸一, ほか: 辜丸部(精索下部)に原発した平滑筋肉腫の1剖検例. *岡山医学会誌* **68**: 51-58, 1956
- 3) 高羽夏樹, 細見昌弘, 関井謙一郎, ほか: 精索平滑筋肉腫の1例. *泌尿紀要* **37**: 191-193, 1991
- 4) 鈴木 誠, 後藤智隆, 宮下 厚: 精索平滑筋肉腫の1例. *泌尿器外科* **8**: 1123, 1995
- 5) 深澤 立, 水谷 隆, 亀山周二, ほか: 精索平滑筋肉腫の1例. *泌尿器外科* **9**: 80, 1996
- 6) 永江浩史, 鈴木和雄, 藤田公生: 精索平滑筋肉腫の1例. *泌尿紀要* **44**: 905-906, 1998
- 7) Watanabe J, Soma T, Kawa G, et al.: Leiomyosar-

- coma of the spermatic cord. *Int J Urol* **6**: 536-538, 1999
- 8) Caton CN, Cummings BJ, Fornasier V, et al.: Adult paratesticular sarcomas: a review of 21 cases. *J Urol* **146**: 342-345, 1991
- 9) Fagundes MA, Zietman AL, Althausen AF, et al.: The management of spermatic sarcoma. *Cancer* **77**: 1873-1876, 1996
- 10) Maurer HM, Beltangady M, Gehan EA, et al.: The intergroup rhabdomyosarcoma study-I: a final report. *Cancer* **61**: 209-220, 1998
- 11) Glenn J, Kinsella T, Glatstein E, et al.: A randomized trial of adjuvant chemotherapy in adults with soft tissue sarcomas of the head and neck, breast and trunk. *Cancer* **55**: 1206-1214, 1985
- 12) Chang AE, Kinsella T, Glatstein E, et al.: Adjuvant chemotherapy for patients with high-grade soft tissue sarcomas of the extremities. *J Clin Oncol* **6**: 1491-1500, 1988
- 13) Bramwell V, Rouesse J, Stewart W, et al.: Adjuvant CYVADIC chemotherapy for adult soft tissue sarcoma-reduced local recurrence but no improvement in survival: a study of the European Organization for Research and Treatment of Cancer Soft Tissue and Bone Group. *J Clin Oncol* **12**: 1137-1149, 1994
- (Received on November 5, 2001)
(Accepted on January 4, 2002)