

陰嚢内横紋筋肉腫の1例

徳島大学医学部泌尿器科学教室（主任：黒川一男教授）

横	関	秀	明
稲	井		徹
香	川		征
平	石	攻	治

A CASE OF INTRASCROTAL RHABDOMYOSARCOMA

Hideaki YOKOZEKI, Toru INAI,

Susumu KAGAWA and Koji HIRAISHI

*From the Department of Urology, School of Medicine, the University of Tokushima**(Director: Prof. K. Kurokawa)*

We report a case of intrascrotal rhabdomyosarcoma. A 15-year-old boy visited our clinic with the chief complaint of swelling of the right hemiscrotum. He had a history of fever and right hemiscrotal pain. With the initial diagnosis of acute epididymitis, the patient underwent medical therapy with antibiotics. One month later, because the mass had not responded to medical therapy, a right inguinal orchiectomy was done. Histologic examination revealed rhabdomyosarcoma. The patient received retroperitoneal lymph node dissection and combined chemotherapy with cyclophosphamide, bleomycin, actinomycin-D, adriamycin and vinblastine. He was well 5 years and 10 months postoperatively with no evidence of tumor recurrence or metastasis.

Key words: Intrascrotal rhabdomyosarcoma, Retroperitoneal lymph node dissection, Adjuvant chemotherapy

緒 言

泌尿器科領域の臓器において肉腫の発生は決して珍しいものではないが、肉腫が陰嚢内に発生することは比較的まれである。

今回、われわれは陰嚢内横紋筋肉腫の1例を経験したので若干の文献的考察をくわえてこれを報告する。

症 例

症例 15歳、高校生

主訴：右陰嚢内容物の有痛性腫大

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：4歳のとき、左鼠径ヘルニアの手術

現病歴：1980年4月29日、右陰嚢内容物の急激な腫脹をきたし、自発痛、発熱を伴うため当科外来を受診

す。急性精巣上体炎を疑い、抗生物質、消炎剤にて保存的に経過を見た。4日後には腫瘍は約半分の大きさに消退し疼痛もなくなったが、約1カ月後依然腫瘍は残存していたため、手術目的にて入院した。

現症：初診時、右陰嚢は発赤し陰嚢内容物はりんご大に腫脹していた。触診上精巣上体らしきものを触知するも、精巣との移行は判別し難く、全体として腫瘍が形成されていた。腫瘍の外側部には圧痛が著明であった。1カ月後の所見では、腫瘍は残存し大きさは初診時の約半分となっていたが、精巣、精巣上体の区別はできなかった。胸腹部理学所見では異常は認めず、表在性リンパ節の腫大も認めなかった。

入院時検査成績：RBC $530 \times 10^4/\text{mm}^3$, WBC $6,700/\text{mm}^3$, Hb 14.7 g/dl, Ht 44.7%, GOT 21 U/L, GPT 15 U/L, LDH 192 U/L, Al-P 13.1 KAU,

T.P 6.4 g/dl, BUN 10/dl, Cr. 1.0 mg/dl, Na 139 mEq/L, K 3.7 mEq/L, Cl 105 mEq/L, Ca 9.1 mg/dl, ESR 22 mm/lh, AFP(-)

手術所見・鼠径部切開にて精索を露出後これを阻血し、陰嚢内容物を脱転、観察したところ精巣とは別個に全体を固有鞘膜に包まれた腫瘍が認められたため、高位除睾術を施行した。腫瘍の陰嚢皮膚への浸潤は認められなかった。

摘出標本 (Fig. 1) 腫瘍は被膜に被われ、白膜で包まれた精巣とは区別でき、また精巣上体は萎縮していた。精巣上体との剥離は可能であった。腫瘍断面は黄色充実性であり、肉眼的には精索から発生したと推定された。精巣には特に異常は認められなかった。

組織学的所見 腫瘍細胞は胞体が大きく細胞質の少ない空胞状を呈し、粘液腫様の変化を示していた。また、他の部位には紡錘形の細胞が流れるように配列し (Fig. 2)、典型的な横紋筋肉腫と診断した。PTAH染色で横紋を有する細胞が認められる (Fig. 3)。

経過：術後の胸部X線、IVP、リンパ管造影、肝シンチなどには異常を認めなかったが、再発予防のため

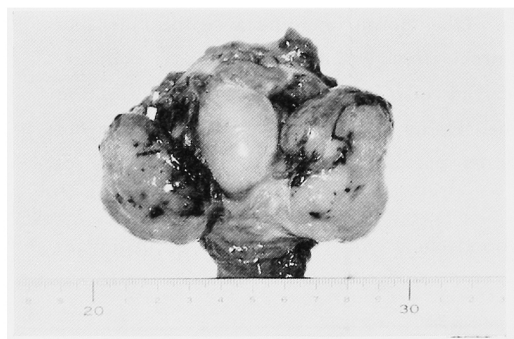


Fig. 1. Macroscopic appearance of the right intrascrotal tumor. The tumor was clearly separated from the testis.

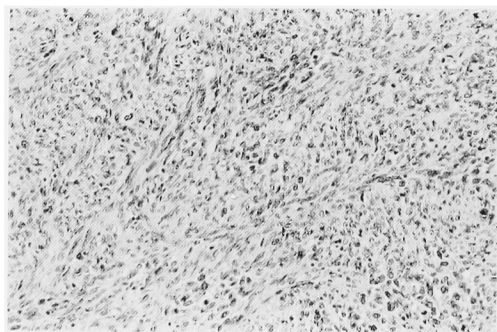


Fig. 2. Histologically tumor was spindle cell sarcoma, embryonal type.

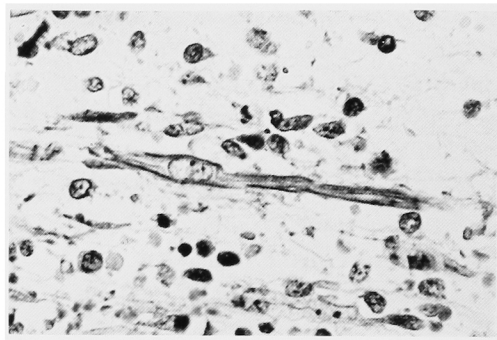


Fig. 3. A cell with cross-striation was found in the PATH stain.

に、化学療法と後腹膜リンパ節郭清術を施行した。化学療法は、cyclophosphamide, bleomycin, actinomycin-D, adriamycin, vinblastine の5者併用を1クール行ない、2週間後白血球数の回復した時点で後腹膜および右腸骨領域のリンパ節を郭清した。摘出リンパ節には転移所見は認めなかった。術後経過は良好であり、定期的に維持化学療法として上記5者併用療法を計6回施行し、5年10カ月後の現在再発を認めていない。

考 察

陰嚢内横紋筋肉腫は比較的まれな疾患であり、本邦においては1983年に後藤ら¹⁾が72例を集計報告している。今回後藤らの報告以降の症例を集計すると、調査しえた範囲で8例の報告があり²⁻⁷⁾、自験例は81例目となる。

欧米では、1979年に Olney ら⁸⁾が162例を集計し、詳細に報告している。

陰嚢内の横紋筋肉腫の発生部位としては、精索、精巣、固有鞘膜、精巣上体、陰嚢のいずれもが可能性があるが、頻度は精索と傍精巣とが大部分である⁸⁾。さらに腫瘍自体の浸潤の速さのために正確な発生部位を見極めることは難しい。自験例でも、肉眼的には精巣とは遊離可能であり、精索からの発生を疑わせたが、確定不能のために陰嚢内に発生したと記載した。本邦でも陰嚢内あるいは傍精巣として報告された例が多い。

本症の症状は、当然ながら陰嚢内腫瘍が第一を占め、疼痛を伴う場合もある⁸⁾。自験例では陰嚢部の疼痛および発熱を伴っていたため、初診時には急性精巣上体炎を疑い保存的療法が施行された。除睾術が行なわれたのは約1カ月後であり、鑑別診断が難しかったこともあるが、やはり常に精巣腫瘍を念頭におき診療にあたるべきである。自験例のように、組織学的に急

性精巣上体炎の合併も認められている症例では鑑別診断が重要になってくる。この経験を反省するとともに、いわゆる acute scrotum に対する注意を喚起したい。

近年 acute scrotum に対する検査として、シンチグラフィの有用性も認められ⁹⁾、鑑別診断の正確度は増しつつある。

本症の進展度分類としては、The intergroup rhabdomyosarcoma study classification があり⁸⁾、stage I-III に分類される。この分類では、後腹膜リンパ節転移の有無が特に重視されており、治療法、予後と密接に関係している。すなわち本症における転移様式としては、リンパ行性転移と血行性転移の2種があるが、その頻度は Banowsky ら¹⁰⁾によれば、2で1でリンパ行性転移が多いといわれる。

本症の治療としては、正確な staging を行なうことがその第一歩と考えられ、進展度に基づいた治療法の選択がなされるべきである。原則的には後腹膜リンパ節郭清術 (RPLND) が施行されており^{11,12)}、これは同時に staging の意味も有する。Debryune ら¹³⁾は micrometastasis を検索し、adjuvant chemotherapy を減らしたり、放射線療法を避けるために RPLND の必要性を述べている。

しかし、必ずしも全症例に RPLND が行なわれるわけではなく、Olive ら¹⁴⁾は原発巣が完全に除去され、リンパ管造影で転移を認めない場合には RPLND を避けようと述べている。これはすなわち stage I にあてはまり、stage I の症例においては adjuvant chemotherapy のみで良好な予後が得られている。

自験例では臨床的には stage I と診断されたが RPLND が施行され、さらに adjuvant chemotherapy も行なわれた。1例のみの経験であり現時点で stage I の本症に対する治療法を決定してしまうことは困難であるが、micrometastasis をリンパ管造影のみでとらえることは難しく、Olney ら⁹⁾が述べるごとく1年以内に83%、2年以内に96%が転移を起こすことを考えると、積極的に RPLND を施行すべきであると考えている。

重要なことは、RPLND のみでなく化学療法の併用を行なうことであり、Debryune ら¹³⁾の7例は RPLND と化学療法の併用により全例生存しており、積極的な combination therapy により本症の予後は今後さらに改善してくるものと考えられる。

結 語

陰嚢内傍精巣に発生した横紋筋肉腫の1例を報告し

た。後腹膜リンパ郭清術と化学療法とを施行し、5年10ヵ月を経過した現在も再発を認めていない。

なお、本論文の要旨は日本泌尿器科学会第28回四国地方会で発表した。

文 献

- 1) 後藤敏明・榊原尚行・大橋伸生・斯波光生：傍辜丸横紋筋肉腫の2例。西日泌尿 43: 1213~1218, 1981
- 2) 坂本日朗・阿世知節夫：傍辜丸部横紋筋肉腫の1例。西日泌尿 44: 167, 1982
- 3) 小谷俊一・瀧田 徹：パラプレジア症状をきたした陰嚢内横紋筋肉腫の1例。日泌尿会誌 75: 344, 1984
- 4) 山本 敏・岩崎卓夫・岡部達士郎・桐山奮夫・吉田 修・友吉唯夫：傍辜丸横紋筋肉腫の2例。日泌尿会誌 74: 273, 1983
- 5) 片海善吾・北村 温・古河内忠・松崎 理：小児傍辜丸横紋筋肉腫の1例。日泌尿会誌 74: 449, 1983
- 6) Kage M, Kokiro M, Arakawa M, Nakamura Y and Kawada H: Paratesticular rhabdomyosarcoma. Acta Pathol Jpn 33 (4): 817~821, 1983
- 7) 高山一生・今村 章・上田豊史：陰嚢内横紋筋肉腫の1例。西日泌尿 45: 1337, 1982
- 8) Olney LE, Narayama A, Loening S and Culp DA: Intrascrotal rhabdomyosarcoma. Urology 14: 113~125, 1979
- 9) Golimbu M, Florio FE, Al-Askari S, Morales PA and Passalacqua A: Value of scrotal scanning-Report of 62 Cases-. Urology 25: 89~92, 1985
- 10) Banowsky LH and Shultz GN: Sarcoma of the spermatic cord and tunics: Review of the literature, case report and discussion of the role of retroperitoneal lymph node dissection. J Urol 103: 628~631, 1970
- 11) Malek RS and Kelalis PP: Paratesticular rhabdomyosarcoma in childhood. J Urol 118: 450~453, 1977
- 12) Raney RB Jr, Hays DM, Lawrence W Jr, Soule EH, Tefft M and Donaldson MH: Paratesticular rhabdomyosarcoma in childhood. Cancer 42: 729~736, 1978

- 13) Debryune FMJ, Bokkerink JPM and de Vries JDM: Current concepts in the management of paratesticular rhablomyosarcoma. Eur Urol 11 : 289~293, 1965
- 14) Olive D, Flamant F, Zucker JM, Voute P, Brunat-Mentigny M, Otten J and Dutou L: Paraaortic lymphadenectomy is not necessary in the treatment of localized paratesticular rhabdomyosarcoma. Cancer 54: 1283~1287, 1984

(1986年3月24日受付)