

卵巣上皮型精巣腫瘍の1例

西本 光寿, 清水 信貴, 菊池 亮, 小林 泰之
 山本 豊, 南 高文, 林 泰司, 辻 秀憲
 野沢 昌弘, 吉村 一宏, 石井 徳味, 植村 天受
 近畿大学医学部泌尿器科

A CASE OF TESTICULAR TUMOR OF OVARIAN EPITHELIAL TYPE

Mitsuhisa NISHIMOTO, Nobutaka SHIMIZU, Takashi KIKUCHI, Yasuyuki KOBAYASHI,
 Yutaka YAMAMOTO, Takafumi MINAMI, Taiji HAYASHI, Hidenori TSUJI,
 Masahiro NOZAWA, Kazuhiro YOSHIMURA, Tokumi ISHII and Hirotsugu UEMURA
The Department of Urology, Kinki University Faculty of Medicine

Testicular tumors of ovarian epithelial types are rare, and their etiology is unknown. Moreover, a clear treatment policy has not become settled. Under the diagnosis of a testicular tumor, this patient underwent a high orchiectomy, and the pathology revealed testicular tumor of ovarian epithelial type. CA125 was elevated for three years post-operatively and a recurrence was discovered in the left inguinal region by positron emission tomography-computed tomography. Therefore, tumor extirpation was performed. The pathology result confirmed the recurrence of testicular tumor of ovarian epithelial type. After the surgery, the patient was given combined therapy with paclitaxel and carboplatin, which is a regimen of ovarian cancer, on a triweekly basis. After five courses of this therapy, the patient remains in remission.

(Hinyokika Kyo 59 : 753-757, 2013)

Key words : Testicular tumor, Ovarian epithelial type, Paclitaxel and carboplatin

緒 言

精巣腫瘍は10万人あたり1か2人と頻度の少ない疾患である。その中でも卵巣上皮型腫瘍は稀な組織型である。今回われわれは傍精巣原発の卵巣上皮型腫瘍の1例を経験したので若干の文献的考察を含め報告する。

症 例

患 者 : 61歳, 男性

主 訴 : 左無痛性陰嚢内容腫大

既往歴 : 糖尿病, 脂質異常症

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2000年頃から左無痛性陰嚢内容腫大を自覚も放置していた。2009年5月に近医を受診した。精巣腫瘍疑いにて当科紹介となる。

初診時身体所見 : 無痛性の左陰嚢内容腫大・弾性硬・表面不整・透光性を有する。対側に異常所見は認めず、表在するリンパ節は触知せず、腹部平坦・軟であった。

初診時検査所見 : 末梢血 ; WBC : 6,600/ μ l, RBC : 517 $\times 10^4$ / μ l, Hb : 14.7 g/dl, Plt : 27.1 $\times 10^4$ / μ l, TP : 7.4 g/dl, Alb : 4.6 g/dl, AST : 16 IU/l, ALT : 12 IU/l, ALP : 386 IU/l, CPK : 108 IU/l, AMY : 109 IU/l, Glucose : 78 mg/dl, BUN : 19 mg/dl, Cre : 0.78 mg/dl,

Ca : 10.0 mg/dl, CRP : 0.059 mg/dl, AFP : 4 ng/ml, β -hCG : 0.1 ng/ml, sIL2R : 478 U/ml, LDH : 152 U/l.

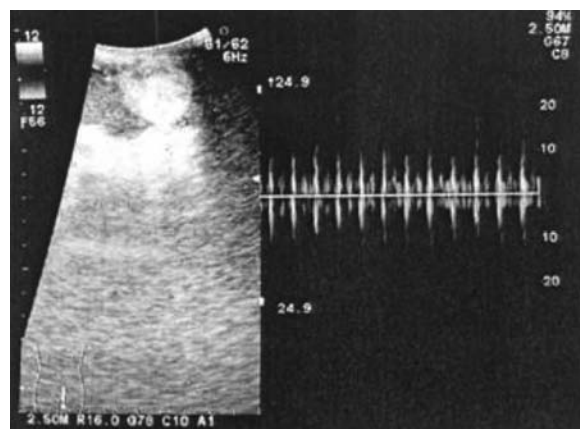
一般的な精巣腫瘍マーカー含め異常値は認めなかった。

初診時画像所見 : 超音波では精巣血流に異常は認めなかった (Fig. 1a)。腹部骨盤CTでは精巣は均一な低信号を示し陰嚢水腫もしくは精巣腫瘍が疑われた (Fig. 1b)。ほか、転移は認めなかった。

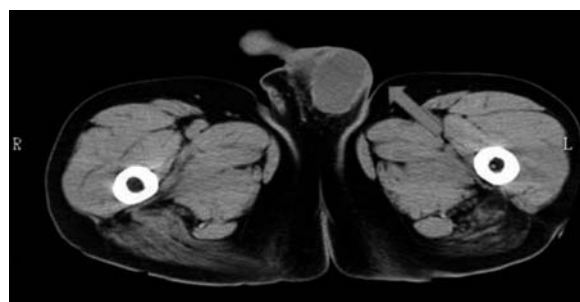
確定診断目的にて2009年11月2日高位精巣摘除術を施行した。摘出標本の精巣断面は一部結節状の硬結があり、また陰嚢水腫と思われる黄色透明の液体も内容物として認めた (Fig. 1c)。

病理組織所見 : 精巣の外側部を主として乳頭状構造を有する円柱状の異型細胞の増生巣が散見され、精巣白膜表面にも認め一部は精巣内にも浸潤している。異型細胞はN/C比の高い卵円形で明瞭な核小体を有し、好酸性の内容物を細胞体に含んだ砂粒体 (psammoma body) が散見された (Fig. 2a)。砂粒体は5~10%を有し、また各種免疫染色でWT-1/EMA/CA125/CK7/CK20が陽性、S-100は一部陽性、その他は陰性であった (Fig. 3)。以上より精巣腫瘍—tumor of ovarian epithelial type serous carcinoma of the testisと診断した。

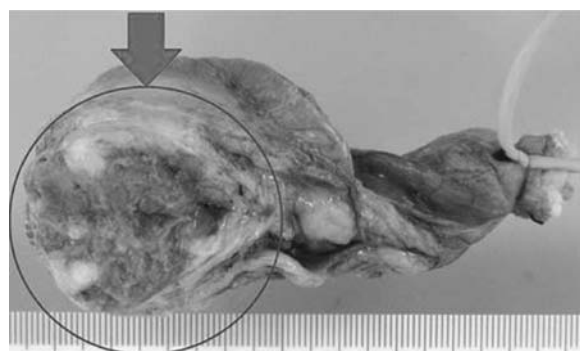
術後経過 : 前述の組織型は、CA19-9, CA125,



a



b

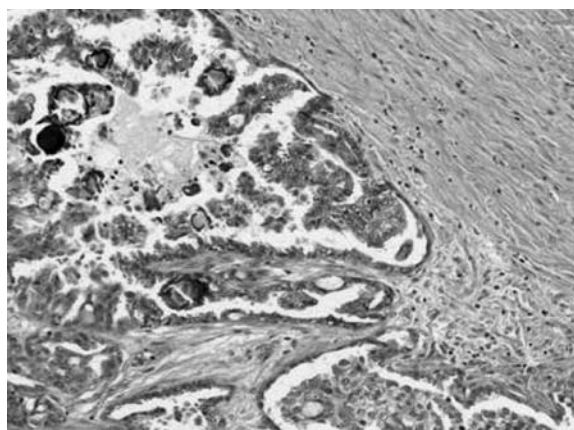


c

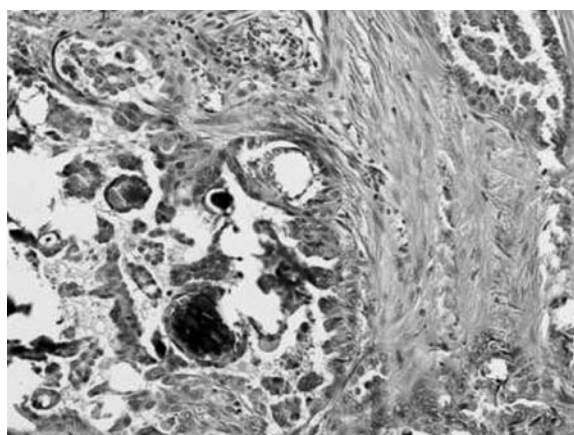
Fig. 1. a: Original echo. Blood flow was normal. b: Original CT. CT showed low intensity area. c: Macroscopic findings of the tumor specimen. The tumor was 3.5×2.5 cm with node of elastic hard and yellow transparent exudate.

CEA の腫瘍マーカーが高値を示すことがあること¹⁻⁴⁾・明確な術後化学療法が確立されていないことから、術後は定期的な腫瘍マーカーの測定と画像評価にて厳重に経過観察することとした。2012年2月(術後2年3カ月経過): CA125 が 45 U/ml (基準値 35 U/ml 以下)、さらに3カ月後 53 U/ml と上昇傾向となった。単純 CT では明らかな変化を認めていなかったが、PET-CT にて左鼠径部に (SUV max : 3.03) 集積を認めた (Fig. 4a)。転移を否定できず脊椎麻酔下に左鼠径部腫瘍摘出および外腸骨および閉鎖リンパ節郭清術を施行した。

手術所見: 左下腹部に傍腹直筋切開にて骨盤腔至り



a



b

Fig. 2. a: Primary lesion ($\times 200$, HE). Histopathological findings showed a psammoma body. b: Metastatic lesion ($\times 200$, HE).

尿管を確保・外腸骨動静脈を同定し、遠位に剥離すると硬結を伴う約 2 cm の腫瘤を認める。また外腸骨静脈と閉鎖神経の間にも同様の腫瘤あり・摘出した。摘出標本の表面は弾性硬・断面は黄色調であった (Fig. 4b)。

病理組織所見: 大小不同の濃染核を有する円柱状の異型細胞が乳頭腺管上に配列し、砂粒体 (psammoma body) の形成を伴っていた (Fig. 2b)。免疫染色でも原発巣の結果と同様の serous adenocarcinoma であり、転移巣と診断した。

転移巣術後経過: 転移を有する卵巢上皮型精巣腫瘍のため文献上散見される術後化学療法を追加治療として選択した。化学療法は卵巢癌の 1st line として報告のある paclitaxel と carboplatin の triweekly 療法 (3 週おき) で施行した^{2,3,5)}。術前高値であった CA125 は術後第 4 カ月に基準値内に低下した。副作用 (有害事象) としてグレード 2 の脱毛を認めた以外、グレード 1 以上のものは有さなかった。5 コース終了して現在のところ画像上再発病変は認めておらず、CA125 は基準値内で経過している。今後定期的な画像評価・腫瘍マーカー測定で厳重に経過観察していく予定である。

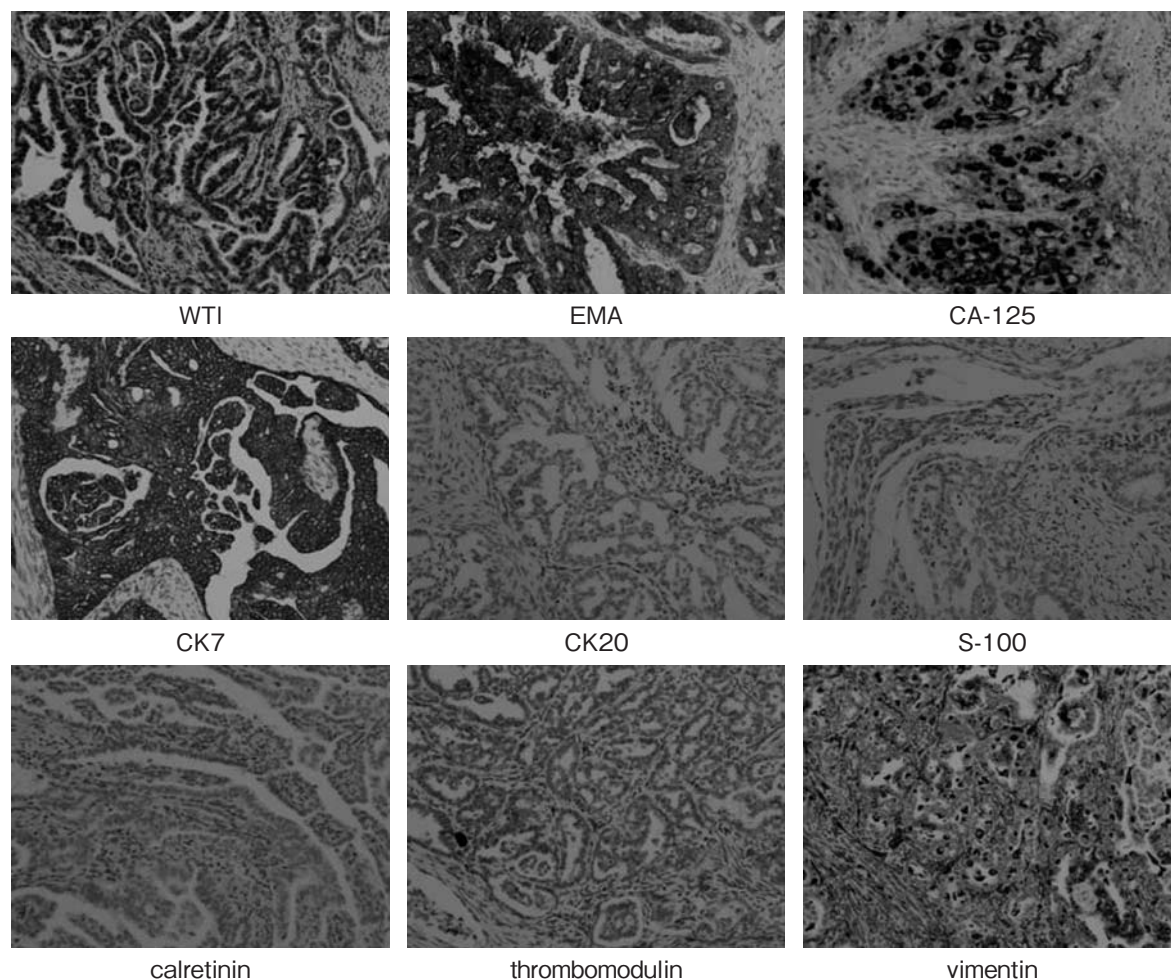


Fig. 3. Immunohistochemical staining. It was positive for WT-1, EMA, CA125, CK and S-100. It was negative for calretinin, thrombomodulin and vimentin.

考 察

本症例の病理組織型は精巣腫瘍の中でも稀な一型である。卵巣の上皮性腫瘍に類似している。発生機序は不明だが、Maruschke らの報告によるとミューラー管遺残>精巣鞘膜の中皮に由来する^{1,2,4,6-8,9)}という説が有力視されている。種類としては、serous: 漿液性・mucinous: 粘液性・endometrioid: 類内膜型・clear: 明細胞型・transitional: 移行上皮型・squamous: 扁平上皮型の6種に分類される。最も多いのが serous tumor とされている。Paratestis の serous tumor は Heschman, Ross らによって1974年に初回報告されている¹⁰⁾。Maruyama らは paratestis の serous tumor は26症例¹¹⁾、Yuk らは serous tumor が50例に満たないと報告している¹²⁾。一方で Azuma らの報告では mucinous type は特に少なく20例と報告している⁵⁾。

通常精巣腫瘍の好発年齢は小児期と20~30歳代であるが、本組織型は中年(50歳前後)に好発年齢を有する^{1,2,7,8,12)}。

主訴は無痛性陰嚢腫大>無痛性精巣腫瘍・水腫が多い。鈍痛を伴うこともあるが、大部分が無痛性であ

る。AFP・ β -hCG・LDH といった胚細胞腫瘍で高値を示す腫瘍マーカーは基準値内を示すことが多く、CA125・CA19-9 が高値を示す文献が散見される¹⁻⁴⁾。Serosus tumor は特に CA125 が高値になると報告されており、本症例では、CA125 は高値を示すが CA19-9 は基準値内であった。

Yuk らの報告では、免疫染色では、EMA, CA125, CK7, EP4 and S-100 が陽性になり、逆に calretinin, thrombomodulin, vimentin は陰性になると報告している¹²⁾。本症例も同様の結果となっている。転移速度は比較的緩徐であるとされているが、再発症例の報告が少なく、明確でない。再発・転移を有する症例は境界悪性の報告が散見される。Serosus tumor については転移・再発を有した報告は、検索しうる限り認めない¹³⁾。治療方法としては、まず高位精巣摘除術が選択され、術後の治療法としては経過観察群か術後化学療法を選択する^{2,3,5)}。経過観察群が報告としては多い。化学療法は卵巣癌の治療法に基づいて、1st-line: cisplatin + taxane 系, 2nd-line: doxorubicin または gemcitabine による加療が選択されている^{2,3)}。画像評価方法・期間として、明確な規定はない。病期決定に

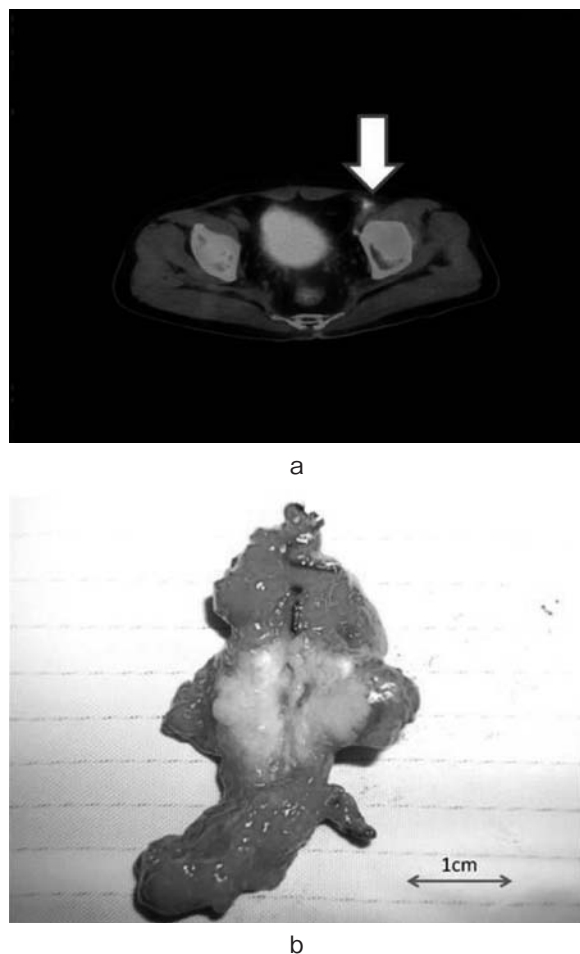


Fig. 4. a: A recurrence was discovered in the left inguinal region by PET-CT. b: Macroscopic findings of the tumor specimen. The tumor confirmed the recurrence of testicular tumors of ovarian epithelial types.

は単純CT，治療後の経過観察については FDG-PET/CT で腫瘍増大の有無を観察していくことが推奨される¹⁴⁾。

精巣の serous tumor の予後については明らかにされていないが，卵巣の serous tumor における生命予後には砂粒体の占有率が関係するという報告がある¹⁵⁾。占有率の割合に応じて PB0～3 の4つのグレードに区別され (PB0—占有率0 / PB1—占有率0～5 % / PB2—占有率5～50 % / PB3—占有率50 %以上)，PB2～3 > PB0～1 で予後に有意差を認めるとされる。本症例においては，5～10 %であり，PB2 と判断できるため，厳重な経過観察が必要と考える。

原発はミュラー管遺残 > 精巣または精巣周囲組織 (特に精巣鞘膜の中皮) と2つに大別される。なお精巣原発の症例は精巣周囲原発の症例と比して報告例は少ない。精巣を原発とする本邦での報告はわれわれが検索しうる限り Numakura らの報告⁷⁾のみであり，他は傍精巣原発である。また，世界的にも卵巣上皮型の精巣腫瘍は検索しうる限り約100例であると考えられ，

非常に稀な症例を経験した。

結 語

卵巣上皮型精巣腫瘍の1例を経験した。本症は，精巣腫瘍の中でも稀な病理組織型であり，明確な治療方針は示されていない。今後同様の症例が経験される場合は治療方針についてその都度症例の背景を含め検討する必要のある疾患といえる。

本論文の要旨は第220回日本泌尿器科学会関西地方会に於いて発表した。

文 献

- 1) Henly J D, Ferry J and Ulbright TM : Miscellaneous rare paratesticular tumors. *Semin Diagn Pathol* **17** : 317-339, 2000
- 2) Maruschke M, Schmidt W, Casper J, et al. : Ovarian type surface epithelial carcinoma of the testis with delayed metastatic spread. *Urol Int* **81** : 119-121, 2008
- 3) Vaughn DJ, Rizzo TA and Malkowicz SB : Chemosensitivity of malignant ovarian-type surface epithelial tumor of testis. *Urology* **66** : 658.e9, 2005
- 4) Mahul B Amin : Selected other problematic testicular and paratesticular lesions: rete testis neoplasms and pseudotumors, mesothelial lesions and secondary tumors. *Mod Pathol* **18** : S131-145, 2005
- 5) Azuma T, Matayoshi Y and Nagase Y : Primary mucinous adenocarcinoma of the testis. *Case Rep Med Epub* **68** : 5946, 2012
- 6) Delahunt B and Nacey JN : Ovarian-type papillary serous cystadenocarcinoma of the testis. *Br J Urol* **77** : 156-157, 1996
- 7) Numakura K, Tsuchiya N, Tsuruta H, et al. : A case of intratesticular endometrioid papillary cystadenocarcinoma. *J Clin Oncol* **41** : 674-676, 2011
- 8) Ulbright TM and Young RH : Primary mucinous tumors of the testis and paratestis: a report of nine cases. *Am J Surg Pathol* **27** : 1221-1228, 2003
- 9) Young RH and Scully RE : Testicular and paratesticular tumors and tumor-like lesions of ovarian common epithelial and müllerian types: a report of four cases and review of the literature. *Am J Clin Pathol* **86** : 146-152, 1986
- 10) Herschman BK and Ross MM : Papillary cystadenoma within the testis. *Am J Clin Pathol* **61** : 724-729, 1974
- 11) Maruyama H, Ohyama N, Hosokawa Y, et al. : Serous borderline tumor of the paratestis. *Pathol Int* **58** : 311-316, 2008
- 12) Ma Y T, Chaudhri S and Cullen MH : Metastatic serous carcinoma of the testis: a case report and review of the literature. *Case Rep Oncol* **4** : 246-249, 2011
- 13) Abdullah LS, Gupta R and Arnst A : Intratesticular borderline serous tumor. *Int J Urol* **13** : 1536-1538,

2006

- 14) Siekiera J, Malkowki B, Jozwicki W, et al. : Can we rely on PET in the follow-up of advanced seminoma patients? *Urol Int* **88** : 405-409, 2012
- 15) Motohara T, Tashiro H, Miyahara Y, et al. : Long-term oncological outcomes of ovarian serous carci-

noma with psammoma bodies ; a novel insight into the molecular pathogenesis of ovarian epithelial carcinoma. *Cancer Sci* **101** : 1550-1556, 2010

(Received on May 13, 2013)
(Accepted on July 9, 2013)