

鼠径部腫瘍を契機に発見された Myxoid liposarcoma の 1 例

吉田 健志¹, 中村英二郎¹, 河原 貴史¹, 井上 高光¹
 澤崎 晴武¹, 神波 大己¹, 吉村 耕治¹, 高橋 毅¹
 清川 岳彦¹, 西山 博之¹, 伊藤 哲之¹, 賀本 敏行¹
 小川 修¹, 藤井 弘子², 塩見 達志², 小谷 泰一²
 三上 芳喜², 真鍋 俊明²

¹京都大学医学部附属病院泌尿器科学教室, ²京都大学医学部附属病院病理部

A CASE OF MYXOID LIPOSARCOMA IN THE RIGHT INGUINAL REGION: A CASE REPORT

Kenji YOSHIDA¹, Eijiro NAKAMURA¹, Takashi KAWAHARA¹, Takamitsu INOUE¹,
 Harutake SAWAZAKI¹, Tomomi KAMBA¹, Koji YOSHIMURA¹, Takeshi TAKAHASHI¹,
 Hiroyuki NISHIYAMA¹, Takehiko SEGAWA¹, Noriyuki ITO¹, Toshiyuki KAMOTO¹,
 Osamu OGAWA¹, Hiroko FUJII², Tatsushi SHIOMI², Yasukazu KOTANI²,
 Yoshiki MIKAMI² and Toshiaki MANABE²

¹The Department of Urology, Kyoto University Graduate School of Medicine

²The Department of Pathology, Kyoto University Graduate School of Medicine

We report a case of myxoid liposarcoma developed in the right inguinal region. A 45-year-old man visited our hospital with a chief complaint of painless right inguinal mass. He was diagnosed with right direct inguinal hernia for the first time and received a hernia repair. However, the size of the inguinal mass increased gradually after the operation. Then, the tumor was re-evaluated by imaging study such as ultrasonography, computed tomography and magnetic resonance imaging. A fatty mass 4.0 cm in diameter was demonstrated and the tumor was diagnosed as a liposarcoma preoperatively. In addition to the right high orchiectomy, surrounding fatty tissue was also removed at the time of the operation. Histological examination revealed a myxoid liposarcoma and the existence of several daughter regions outside the pseudo-capsule. Right spermatic cord and testis were intact. Postoperatively, he received 54 Gy dose of radiation therapy to right inguinal region for the prevention of the local recurrence of the disease.

(Hinyokika Kiyo 52 : 727-731, 2006)

Key words : Myxoid liposarcoma, Inguinal region

緒 言

脂肪肉腫は下肢や後腹膜に好発することが多く、鼠径部に発生することは稀であるとされている。Myxoid type は well differentiated type と同様に脂肪肉腫の分類の中では、比較的予後が良好であるとされている。今回われわれは、右鼠径部腫瘍を契機に発見された myxoid liposarcoma の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 40歳台, 男性
 主訴 : 右陰嚢部膨隆
 既往歴 : 2 歳, 左鼠径ヘルニア根治術。

42歳, VSD 閉鎖術 (小学生のころ指摘され, 無治療経過観察)。

46歳, 右鼠径ヘルニア根治術 (PHS : Prorine-mesh-hernia system 法)。

家族歴 : 特になし

現病歴 : 2004年12月, 右鼠径部に腫瘍を自覚し当科受診。右鼠径部にうずら卵大の腫瘍病変を認めた。触診・エコー上, 鼠径管と連続を認める右鼠径ヘルニアと診断し, 2005年1月当院外科紹介, 右鼠径ヘルニアの診断の下, PHS 法を用いた鼠径ヘルニア根治術を施行した。しかし, 術後も同部位の腫瘍は消失せず徐々に増大傾向となったため, 2005年9月精査加療目的に当科入院となった。

入院時現症 : 右鼠径部・陰嚢起始部に径 4 cm 程の

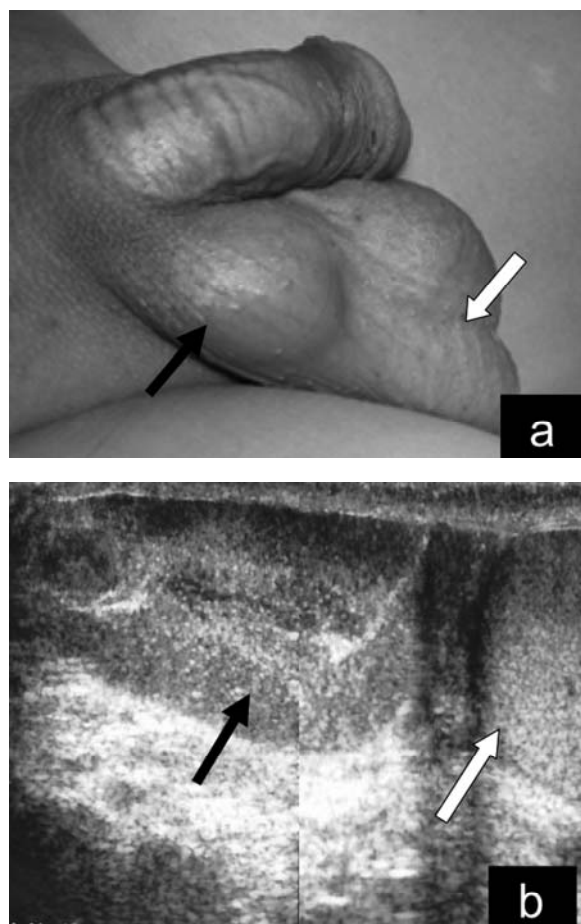


Fig. 1. a: Black and white arrows indicate the inguinal tumor and right testis, respectively. b: Ultrasonography demonstrate that the inguinal tumor is located close to the superior pole of right testis (white arrow: testis, black arrow: tumor).

腫瘍を認めた (Fig. 1a). 腫瘍は表面平滑で可動性を有し圧痛を認めなかった. 精巣との連続性はなく精巣との境界は不明瞭であった. その他, 理学的所見に異常は認めなかった.

血液検査所見: 血算, 生化学検査に異常は認められなかった. AFP: 6.7 ng/ml, hCG: 0.50 mIU/ml 以下, free hCG β : 0.10 ng/ml 以下であり, 血清腫瘍マーカーはすべて正常範囲内であった.

鼠径部エコー検査: 内部に血流に富む high echoic な長径 4.3 cm の腫瘍を認めた. 腫瘍と精巣との関連は不明瞭であった (Fig. 1b).

腹部 CT: 右鼠径部に周囲との境界が明瞭で造影効果を認める長径 4.3 cm の腫瘍を認めた. また, 後腹膜リンパ節の腫脹, 他臓器に病変は認めなかった.

腹部 MRI: 単純 MRI において T1 強調画像で低信号 (Fig. 2a), T2 強調画像で高信号 (Fig. 2b) であった. T1 強調画像にて強い造影効果を認める hyper-vascular な tumor と, その中心部に造影効果が不良

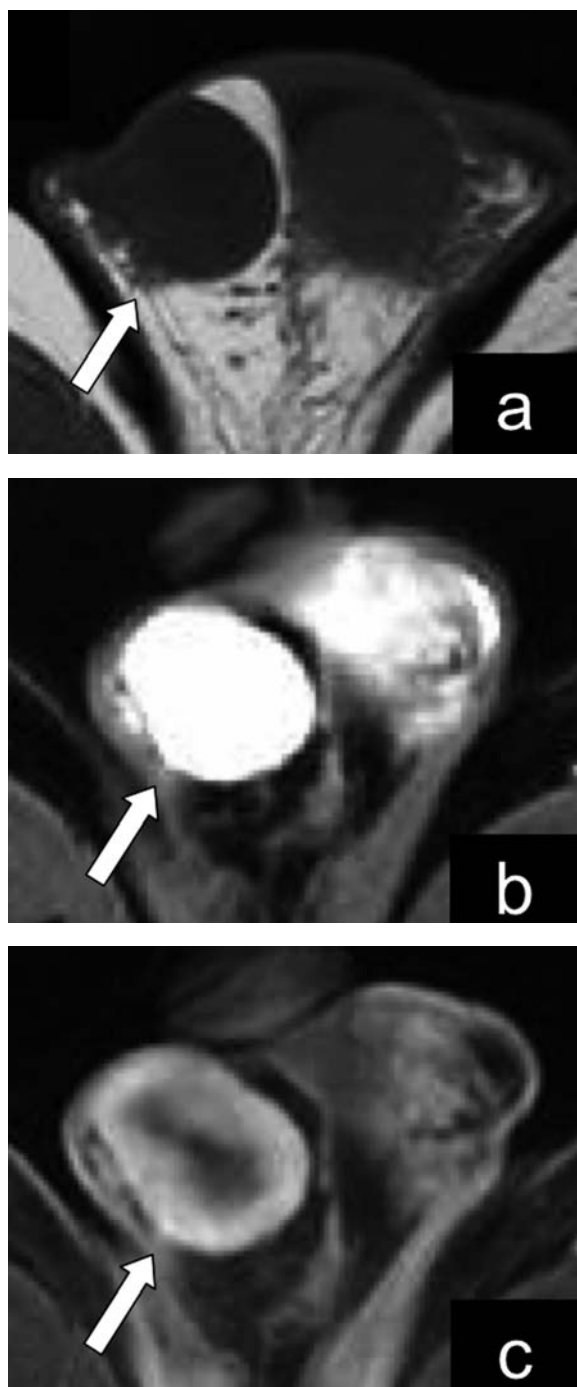


Fig. 2. Magnetic resonance imaging of the abdomen demonstrates right inguinal tumor (arrow). a: plane T1 shows low intensity area. b: T2 shows high intensity area. c: T1 Gd-enhanced image shows enhanced tumor with central edematous non-enhanced region.

な edema を伴う部位を認めた (Fig. 2c).

CT・MRI とともに腹腔内への連続性は認めなかった.

以上の所見より, 偽腫瘍, angiomyxofibroblastoma, carcinoid などの良性疾患も鑑別診断として挙げられたが急激に増大していることより精索発生の liposar-

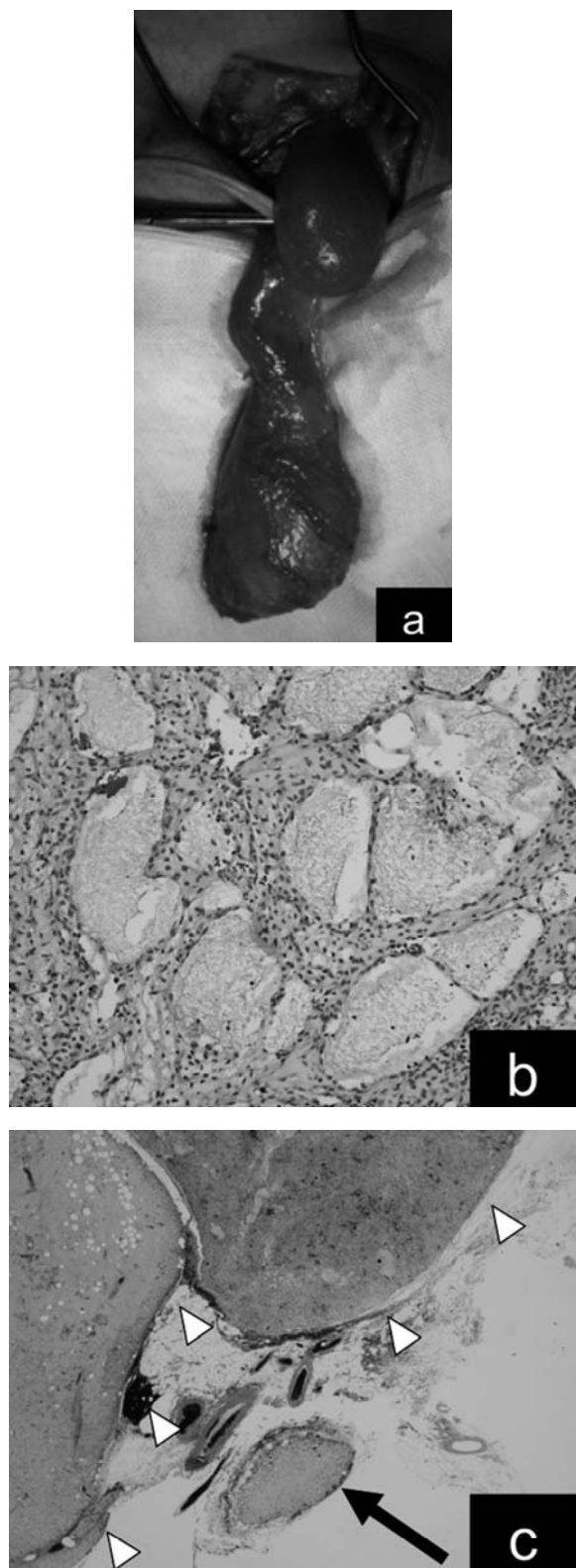


Fig. 3. a: Intraoperative findings. The black arrow shows the tumor. No gross invasion to the spermatic cord was observed. b: Lipoblast in the mature fat tissue and pools of stromal mucin. c: Microscopic findings of myxoid liposarcoma. There are no round cell components. A few daughter regions (black arrow) were observed outside the pseudo-capsule (white arrows).

coma を疑い2005年9月、腰椎麻酔下に右精巣摘除術を行った。

手術所見：外鼠径輪直上から精索に添う形で陰嚢方向へ皮切をおいた。腫瘍は精索に沿う形で外精索筋膜外に存在し、周囲との境界は明瞭で癒着は認められなかった。腫瘍周囲に高分化型脂肪肉腫が存在する可能性が考えられたため、可及的に周囲の脂肪組織を切除した。鼠径管周囲はヘルニア根治術の影響から癒着していたが、術中術前所見において腫瘍の鼠径管への進展は認めなかったため、外鼠径輪レベルで精索・腫瘍周囲へ広がる脂肪組織を結紮切断し、腫瘍・精索・精巣を1塊として摘出した (Fig. 3a)。

病理所見：肉眼所見上、腫瘍は偽被膜有し周囲組織とは繊維性結合組織で繋がっていたが、精索精巣への浸潤は認めなかった。腫瘍断面は灰白色ゼリー状であった。組織学的には、脂肪滴を有する核が辺縁に圧排された細胞、myxoid 成分を含むゼリー状の細胞より構成され、間質内に小型血管の樹状走行を認めた。また、間質内に N/C 比の高い round cell を認めたが細胞密度が低く round cell 成分含まない type の myxoid liposarcoma と診断された (Fig. 3b)。偽被膜周囲に一部 myxoid 成分を含む娘結節が認められた (Fig. 3c)。

術後7日目に退院となり、約半年間転移・再発は認めていない。病理所見にて、偽被膜周囲に myxoid な成分を含む娘結節を認めたため、局所再発予防目的で術後鼠径部から右陰嚢にかけて補助放射線療法 (54 Gy) を行った。

考 察

Liposarcoma は、成人の軟部組織肉腫の10～20%を占めるとされ、鼠径部 (約5%) 陰嚢内 (3.6%) への発生は比較的稀とされている¹⁾。Myxoid liposarcoma (以下 MLS) は、男女差は認めず、好発年齢は40～50歳台であり、liposarcoma 全体の中では約3分の1の症例を占め、well differentiated type につき2番目に多いとされている。好発部位として、四肢深部組織があげられ (2/3 は下肢筋組織に存在)、皮下組織・後腹膜・鼠径部への発生は稀であるとされている²⁾。

Liposarcoma は2003年の WHO 新分類では全6型に分類されている。旧分類での round cell type (以下 RC) は myxoid type の中に含まれているが、これは病理所見において myxoid な間質組織の中に N/C 比の高い round cell が密集する部位が混在することがあり (RC が密に隣り合い細胞間に myxoid 成分を含む間質が存在しない事が特徴)、それらを RC 成分を含む myxoid type と定義したためである²⁾。

本症例は鼠径部に限局した腫瘍であったが、後腹膜

病変が鼠径管を經由し連続していた報告も散見されるため³⁾、後腹膜腫瘍の陰嚢内進展も鑑別診断の1つにあげる必要があると考えられた。また経過を振り返ればヘルニアの術前より腫瘍は存在していたことから、メッシュと腫瘍発生に因果関係は認めなかったと考えている。

Liposarcoma の治療法としては、第一選択は局所腫瘍切除とされている。本症例においても局所切除術を施行したが、腫瘍周囲の脂肪組織の切除範囲を決定することが非常に困難であった。正常脂肪組織との境界が不明瞭であるため周囲組織の可及的な切除が望ましいといった報告があること⁴⁾や、腫瘍が MFH もしくは脱分化型脂肪肉腫であった場合、周囲脂肪組織内の高分化型脂肪肉腫の存在が MFH との鑑別に重要であると考えられることより⁵⁾、今回の手術では広範囲に周囲脂肪組織の切除を行った。結果、偽被膜外に myxoid 成分を含む組織が確認された。

精索発生の脂肪肉腫に対するリンパ節郭清、術後補助療法の有用性に関しては定まった見解はない。精索発生の脂肪肉腫の多くが高分化であり局所再発が多いといった報告や、高分化型・粘液型においては局所再発を認めるのみであったとの報告⁶⁾もあり、リンパ節郭清は行わず経過を見る傾向にある。

化学療法に関しては、liposarcoma に対する CYVADIC 療法の有用性が低いとされているのと同様に、MLS に対する化学療法も放射線療法と比べ高い効果は望めない。ドキソルビシンとダカルバジンの併用療法で転移症例を含む MLS に対し約50%の効果があつたと報告⁷⁾があるが、それ以降まとまった報告は調べた限り認めなかった。

一方放射線療法は MLS に対し良好な成績をあげている。Marginal or intralesional resection であつた MLS : 12例に術後照射を行い、全例約60カ月間再発を認めなかった報告⁸⁾、MLS : 16例に対する術前放射線療法で平均60%の mass reduction が可能であつた報告があり、一般的に MLS の放射線感受性は高いとされている⁹⁾。

Zagars らは、MLS : 71例を集計し、局所再発の既往歴・切除段端陽性の有無が局所再発の危険因子であり、腫瘍径が 5 cm 以上であることが遠隔転移危険因子であると報告している。また、腫瘍の大きさや発生部位は局所再発の危険因子として有意差はなく、遠隔転移は13例中11例 (85%) で肺以外の臓器に認めたとしている¹⁰⁾。また Kilpatrick らは、MLS : 95例を集計し、遠隔転移危険因子・予後規定因子に、病理標本内に認める RC の割合をあげており、0 ~ 5 % の場合は約20%の症例で遠隔転移を認めるとしている¹¹⁾。今回の症例では、病理標本において RC はほぼ認めず、腫瘍径も 5 cm 以下であり、遠隔転移の可能性は

比較的低いと考えている。しかし、病理標本において偽被膜外に myxoid 成分を含む組織が確認されたため、局所再発の可能性が高いと判断し術後放射線治療を施行した。

MLS は放射線感受性が高いとされているが、術後照射 4 年後に再発した症例も報告されており¹²⁾、今後嚴重な経過観察が必要である。

結 語

鼠径部に脂肪肉腫が発生することは稀であるとされている。脂肪肉腫に対する周囲組織の合併切除は標準治療であるが、術後補助療法の必要性については議論の分かれるところが多い。今回われわれは鼠径部に発生した myxoid type の脂肪肉腫を経験したため、文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Evans HL : Liposarcoma. a study of 55 cases with a reassessment of its classification. *Am J Surg Pathol* **3** : 507-523, 1979
- 2) Fletcher CDM, Unni KK and Mertens F : Pathology and genetics of tumors of soft tissue and bone (World Health Organization Classification of Tumors). Lyon France, IARC Press, 2002
- 3) 大森治樹, 百留亮治, 山口恵実, ほか : 右鼠径部腫瘍を契機に発見された後腹膜脂肪肉腫の 1 例. *日臨外会誌* **66** : 1771-1775, 2005
- 4) Vorstman B, Biocck NL and Politano VA : The management of spermatic cord liposarcomas. *J Urol* **131** : 66-69, 1984
- 5) 西澤恒二, 寒野 徹, 高橋 毅, ほか : 診断に苦慮した後腹膜原発脂肪肉腫の 1 例. *泌尿紀要* **52** : 11-14, 2006
- 6) 萩原徳康, 西田泰幸, 藤本佳則, ほか : 6 年後に局所再発をきたした精索脂肪肉腫の 1 例. *泌尿紀要* **48** : 443-446, 2002
- 7) Patel SR, Burgess MA, Plager C, et al. : Myxoid liposarcoma. experience with chemotherapy. *Cancer* **74** : 1265-1269, 1994
- 8) Hatano H, Ogose A and Hotta T : Treatment of myxoid liposarcoma by marginal or intralesional resection combined with chemotherapy. *Anti-cancer Res May-Jun* ; **23** : 3045-3049, 2003
- 9) Graham P, Philip R and Derek W : Radiation response : an additional unique signature of myxoid liposarcoma. *Int J Radat Oncol Biol Phys* **60** : 522-526, 2004
- 10) Zagars GK, Goswitz MS and Pollack A : Liposarcoma : outcome and prognostic factors following conservation surgery and radiation therapy. *Int J Radat Oncol Biol Phys* **36** : 311-319, 1996
- 11) Kilpatrick SE, Doyon J and Choong P : The

- clinicopathologic spectrum of myxoid and round
cell liposarcoma. *Cancer* **77** : 1450-1458, 1996 190-192, 1978
- 12) Johnson DE, Harris JD and Ayala AG : (Received on January 10, 2006)
Liposarcoma of the spermatic cord. *Urology* **11** : (Accepted on April 18, 2006)