

陰囊 Paget 病の 1 例

大垣市民病院泌尿器科 (部長: 磯貝和俊)

高橋 義人*, 米田 尚生, 堀江 正宣, 磯貝 和俊

大垣市民病院皮膚科 (医長: 兼松 勲)

兼 松 勲

岐阜大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 河田幸道教授)

栗 山 学, 河 田 幸 道

PAGET'S DISEASE OF THE SCROTUM

Yoshito TAKAHASHI, Hisao KOMEDA, Masanobu HORIE and Kazutoshi ISOGAI

*From the Department of Urology, Ogaki Municipal Hospital
(Chief: Dr. K. Isogai)*

Isao KANEMATSU

*From the Department of Dermatology, Ogaki Municipal Hospital
(Chief: Dr. I. Kanematsu)*

Manabu KURIYAMA and Yukimichi KAWADA

*From the Department of Urology, Gifu University School of Medicine
(Director: Prof. Y. Kawada)*

We reported a case of Paget's disease of the scrotum, a rare disease in urological field. The patient had successful radical resection of the dermal tumor and scrotal plasty. Paget's disease has a low malignancy and its treatment is necessary as the same manner to scrotal cancer. Although most scrotal malignancies are squamous cell carcinoma, urologists should recognize this borderline disorder exactly such as in this case and treat patients with co-operation to the relative fields.

(Acta Urol. Jpn. 34: 1069~1072, 1988)

Key words: Paget's disease, Extramammary Paget's disease, Genital cancer, and Scrotal cancer

緒 言

Paget 病は、乳房および乳房外のアポクリン腺分布領域に発生する、特有の Paget 細胞を有する皮膚疾患である。皮膚科領域において取り扱われることが多いが、乳房外 Paget 病の好発部位は、陰部、腋窩であり¹⁾、特に陰部 Paget 病では、発生部位から泌尿器科において遭遇し得る疾患と考えられる。今回われわれは、陰囊部に発生した Paget 病を経験したので報告する。

症 例

患者: 72歳, 男性, 歯科医師
主訴: 難治性陰囊部掻痒感

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1986年2月頃, 右陰囊に掻痒感を伴った湿疹様病変が出現した。某皮膚科医院を受診, 頑癬と診断され, 軟膏塗布を続けたが, 2ヵ月経過しても軽快せず, 湿疹様病変は増大してきた。放置し経過をみていたが自然寛解はなく, 病変部は増大し掻痒感も強くなり, 1986年9月上旬, 某外科医院受診。皮膚生検の結果 Paget 病と診断され, 当院皮膚科を紹介された。外科的治療の適応との診断にて, 1986年9月27日当科紹介初診となる。

現病: 体格中等, 栄養良好, 脈拍84/分整, 胸腹部に理学的に異常を認めず, 表在リンパ節は触知されなかった。局所所見としては, 右陰囊部から陰茎根部, 右股間部, 右鼠径部に及ぶ境界明瞭な淡紅色の症状丘疹を認めた。角化は強くなく, 病巣部に一致して強い

* 現: 岐阜大学医学部泌尿器科学教室

痒感があった (Fig. 1).

入院時検査成績：末梢血球数，血液像，血液生化学検査において，著明な異常は認めなかった (Table 1). 各種腫瘍マーカーを検索したところ，TPA の強度高値，IAP の軽度上昇を認めた．扁平上皮癌関連抗原 (ScC-Ag) CEA は正常範囲内であった (Table 2). 陰嚢原発 Paget 病の診断の下，1986年10月7日，全麻下に，腫瘍摘出術兼陰嚢形成術を施行した．



Fig. 1. Macroscopic appearance of Paget's disease at admission

Table 1. Laboratory data at admission

WBC	5700/mm ³	TTT	1.9U
RBC	408x10 ⁴ /mm ³	ZTT	3.8U
Hb	13.0g/dl	GOT	18K-U
Plt.	25.2x10 ⁴ /mm ³	GPT	13K-U
Hemogram		γ-GTP	30mU/ml
Baso.	2%	T.Bil	0.8mg/dl
Eosino.	1%	Al-P	8.2K-A-U
Band	5%	LAP	146G-R-U
Seg.	56%	ChE	1.08pH
Lymph	32%	LDH	337Wro-U
Mono	4%	CPK	63IU/l
		Uric Acid	7.6mg/dl
Na	136mEq/l	BUN	22.0mg/dl
K	4.1mEq/l	Cr	1.3mg/dl
Cl	105mEq/l	T.P.	7.4g/dl
		Alb.	4.3g/dl
		A/G	1.39

Table 2. Serum tumor marker before treatment

CEA	1ng/ml	Ferritin	52ng/ml
β ₂ -MG	1.8ng/ml	SCC-Antigen	0.7ng/ml
TPA	310U/l	IAP	638μg/ml

手術所見 術中迅速凍結切片にて，Paget 細胞の存在の有無を確認しながら，Tumor free を約 3 cm とり，皮下組織を含めて，腫瘍摘出術を施行した．18×8.5 cm の皮膚欠損ができたので，両鼠径部へ減張切開を延ばし，陰嚢形成術を施行した (Fig. 2). このとき，形成術の妨げになり，年齢も考慮したうえで，右徐睾術を施行した．

術後経過 予防的に，CEZ 4g/日を点滴静注しつつ，1日1回創部の消毒を施行した．陰茎根部の縫合部よりの浸出液が，約1週間続いたが，形成された部位の皮膚の色調はよく，感染を起こすこともなく，術後10日目に全抜糸し，10月30日退院した．退院後は当院皮膚科で経過を観察中であるが，術後8ヵ月を経た現在，再発転移は認められていない．

病理組織所見：epidermis が hyperplastic であり，下方へも pseudoepitheliomatous に増生している．胞体が明るく豊富で大型の tumor cell が小胞巣をなして密に，主として epidermis に存在し，一部 dermis でも cribriform や abortive glandular stricture を示した．これらの一部は invasion と考えられた．surgical margin は tumor free であり，最短は陰茎根部であり約 10 mm であった (Fig. 4).

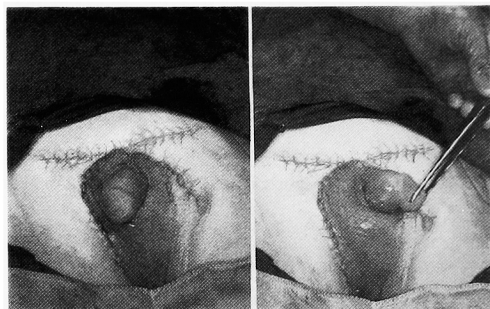


Fig. 2. Macroscopic appearance after operation

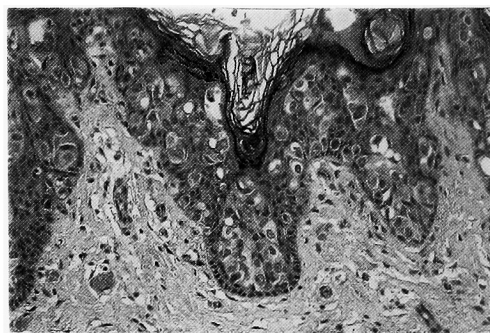


Fig. 3. Microscopic appearance (Hematoxylin and Eosin stain)

考 察

Paget 病は, 1874年 Paget によって発表された疾患²⁾であり, Paget は表皮内に大型で明るい細胞質を有する Paget 細胞が存在することを特徴としている。乳房 Paget 病と乳房外 Paget 病に分類される。前者は40歳以上の女性に多くみられる³⁾のに対し, 後者は平均年齢63歳と比較的高齢者にみられ, 圧倒的に男性に多い。後者は男女とも好発部は, 外陰部であり, 男性では陰囊, 陰茎, 女性では, 大小陰唇に生じ, 肛門に生ずることもある。稀に腋窩にもみられる⁴⁾。

早期の皮疹は癢痒性湿疹を思わせる湿潤面を生じ, 難治性で長い経過ののち, Paget 病としての典型的な皮膚所見を呈することが多い。すなわち, 単発性で境界鮮明な鮮紅色湿潤ないし, びらんを呈する。さらに, 陰部 Paget 病では病巣辺縁部に高度の色素沈着を随判することもある。病歴, 局所所見から, 自験例は陰囊 Paget 病の典型例と考えられ, 外陰部疾患を取り扱うことの多い泌尿器科医には, 外陰部の皮膚所見に対しても入念な観察が必要である。

経織学的には, 角化傾向を欠いた, 大型の明るい cytoplasm を有した Paget 細胞が, 単発あるいは胞巣を形成して epidermal-dermal junction 上に並び, 表皮内に存在することを特徴とし⁵⁾, Paget 細胞の配列様式に因って, 6型の分類が提唱されている⁶⁾。乳房外 Paget 病では, Paget 細胞の cytoplasm 内に amylase 抵抗性 PAS 陽性物質が証明でき, これは, Alcian-blue 染色で異染性を呈する。neuraminidase で陽性反応が消失することから, 酸性ムコ多糖類であると考えられている⁵⁾。

発生に関して, 乳房 Paget 病では Paget 細胞が表皮内癌として存在し, その下方に乳腺腺癌 (intraductal carcinoma) を証明できることが多い。これに対し, 乳房外 Paget 病では, Paget 病が表皮内のみ存在し, 表皮下癌性変化を欠き, 表皮細胞由来の前癌性の Paget 病と, アポクリン腺, 肛門粘膜胚細胞の腺癌が epidermotrophic に, 表皮内に転移をきたした Paget 病に分類されている⁶⁾。実地臨床上是, 癌前駆症としてではなく, Paget 癌として取り扱うことが肝要であり, 実際, 遠隔転移をきたして不幸な転帰をとった例⁷⁾や, 20%が Paget 癌により癌死したとする報告⁸⁾, 原発切除術後3年で局所再発と遠隔転移をみた例⁹⁾もあり, 通常の皮膚癌と同様に, 肉眼的に3cmは健常皮膚を合わせて, 皮下脂肪組織を残さないように切除することが根治的手術として必要である。肉眼的に健常と思われる部分でも, すでに

Paget 細胞は浸潤しており, 自験例でも健常部3cmをあわせて切除したが, 病理組織学的な tumor free は1cmほどであった。リンパ節転移後, 陰囊 Paget 病では, リンパ流からみて鼠径リンパ節が第1所属リンパ節となるが, 疑われる場合には, リンパ節廓清をあわせて施行することが必要である。治療の第1は, 外科的切除であるが, 補助併用療法として軟レ線照射, 5-FU 投与を用いても有用である¹⁰⁾。術後生じた皮膚欠損に対しては, 縫縮術あるいは中間層植皮を用いて形成することが必要であるが, 陰囊部における皮膚欠損で, 切除が広汎にわたり創閉鎖に苦勞する場合には患側の睾丸, 精巣を除去した方が良く¹¹⁾, 自験例では, 年齢をも考慮に入れたうえで, 患側の除睾丸を施行した。

乳房外 Paget 病では, 再発⁹⁾, 転移⁷⁾も散見され, systemic cancer proneness があることに留意し, 他臓器癌の存在を考慮した¹²⁾入念な術後経過観察が必要である。血清 CEA は病勢の進展, 消去とよく合致し¹³⁾, 経過観察のよき follow-up marker となる。自験例では, 術前 CEA 1 ng/ml と, 正常範囲内であり, 術後は常に, 測定限界以下であり, 臨床的にも no evidence of disease の状態である。

泌尿器科で治療された陰囊癌の集計では, ほとんどが扁平上皮癌であり, 稀に基底細胞癌がみられるのみである¹³⁾。しかし, 陰囊癌の特徴の1つとして, 他臓器癌との重複例の多いことが挙げられており¹⁴⁾, 乳房外 Paget 病との共通性である。Paget 病を泌尿器科医が取り扱う機会が少ないことに起因して陰囊癌の集計に Paget 病がみられないのであろうが, 前述のごとく Paget 病は low grade malignancy, Paget 癌といってもよく, 今後は関連する科の相互協力の下, 包括的な陰囊部悪性腫瘍の集計解析が望まれる。

近年, 医学は細分化, 専門化され, 各領域において高度の医療が行われている。しかし, 境界領域の疾病に対しては, 関連する専門科の相互協力が必要となることは, 自験例からも自明である。泌尿器科は, 主として男性尿路, 性器, 女性尿器を対象としているが, 本邦においては皮膚泌尿器科として発足した病院が多く, 一般にもいまだその認識が残っており, 外陰部皮膚疾患を治療することも実地診療上よく経験する。また陰囊癌, 陰茎癌は, 現在では泌尿器科を中心に治療が行われており, low malignant cancer いわれる陰部 Paget 病を泌尿器科医が取り扱う機会が, 今後増えることが考えられる。今回われわれは皮膚科と協力し, radical resection を施行し, 満足のいく陰囊形成術を行い得た。この経験は今後の泌尿器科について

示唆に富むものと考えられた。

結 語

泌尿器科領域において、稀である陰囊 Paget 病の 1 例を報告し、陰囊癌について若干の考察を加えた。

文 献

- 1) 森岡貞雄, 山口全一: Paget 病小嶋理一, 三浦修, 清寺 誠: 基本皮膚科学, 第 1 版第 1 巻 175. 医歯薬出版 東京, 1976
- 2) Paget J: On disease of the mammary areola-preceding cancer of the mammary gland. *St Barth Hosp Res* 10: 87-, 1874
- 3) 久木田淳・佐藤昌三: Axillary Paget 病の 1 例. *皮膚臨床* 9: 485-491, 1967
- 4) Weiner HA: Paget's disease of the skin and its relation to carcinoma of the apocrine sweat gland. *Am J Cancer* 31: 373-403, 1937
- 5) Peterson RO: Paget's disease. *Peterson RO Urologic pathology* 1st ed. p.711, JB Lippincott, Philadelphia, 1986
- 6) 森 俊二: 乳房外 Paget 病の研究. *日皮会誌* 75: 21-46, 1965
- 7) 小路 良, 谷野 誠, 荒井由和, 小寺重行, 高坂 哲, 町田豊平, 上出良一: 陰囊部 Paget 病による腎後性無尿の 1 例. *臨泌* 31: 725-728, 1977
- 8) 宮里 肇: 乳房外 Paget 病の知見補遺. *日皮会誌* 82: 519-, 1972
- 9) Duperrat B and Mascaro JM: Maladie de Pagetabdominoscrotale (3^e presentation). Apparition d'un épithélioma apocrine de la lésion et de lésions de maladie de Paget sur la peau axillaire sus-jacente. *Bull Soc Fran Derm Syph* 71: 176-177, 1964
- 10) 池田重雄, 田嶋公子, 石橋康正, 水谷ひろみ, 宮里 肇, 新村真人, 今井清治, 西脇宗一, 鳥居ユキ: 乳房外 Paget 病. *臨泌* 24: 15-32, 1970
- 11) Kickman CJE and Dufrense M: An assessment of carcinoma the scrotum. *J Urol* 98: 108-110, 1967
- 12) 池田重雄, 池川修一, 江角法安, 増田哲夫, 林原義雄: Paget 細胞 (特に CEA). *皮膚臨床* 28: 1119-1137, 1986
- 13) Ray B and Whitmore WF Jr.: Experience with carcinoma of the scrotum. *J Urol* 117: 741-745, 1977
- 14) Dean AL: Epithelioma of scrotum. *J Urol* 60: 508, 1948

(1987年5月19日受付)