

辜丸細網肉腫の1例

大手前病院泌尿器科（部長：結城清之博士）

柏原 昇

結城 清之

大阪市立大学医学部泌尿器科学教室（主任：前川正信教授）

和田 誠次

RETICULUM CELL SARCOMA OF THE TESTIS:
REPORT OF A CASE

Noboru KASHIHARA and Kiyoshi YUKI

From the Department of Urology, Otemae Hospital

(Chief: Dr. K. Yuki, M. D.)

Seiji WADA

From the Department of Urology, Osaka City University Medical School

(Director: Prof. M. Maekawa, M. D.)

A case of reticulum cell sarcoma of the testis was described.

The patient was a 39-year old man who complained of painless swelling of the right scrotal contents and dull pain in the right inguinal region. Palpation of the abdomen on admission revealed a fist-sized, hard mass.

Exploratory laparotomy, postoperative irradiation and chemotherapy were done after orchiectomy. But he died of cachexia four months after orchiectomy.

At first the testicular tumor was histologically diagnosed as seminoma. Biopsy of the retroperitoneal mass showed reticulum cell sarcoma. The testicular tumor was also diagnosed as RCS retrospectively.

Literature was reviewed briefly.

緒 言

最近、われわれは比較的まれな辜丸細網肉腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：39歳，男子。

主訴：右鼠径部の鈍痛，および右陰嚢内容の無痛性腫脹。

初診：1978年5月6日。

入院：1978年5月8日。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：1977年急性胆嚢炎（入院1ヵ月）

現病歴：本年4月20日右鼠径部に鈍痛があり，翌日

右陰嚢内容の無痛性腫脹に気づいた。発熱，腰痛ともに認めず。出張のため放置していて，5月6日に当科を受診した。

現症：体格，栄養とも中等度。体温36.5°C。脈拍72，整，緊張良好。血圧124/80 mm Hg。眼瞼，眼球結膜に，貧血，黄疸を認めず。全身の表在性リンパ節は触知せず。腹部では臍部より右方にかけて手拳大の硬い腫瘍を触知した。辺縁明瞭であり，圧痛，自発痛ともにない。腫瘍とは関係なく右腎下極を触知した（Fig. 1）。右陰嚢内容は鶏卵大，硬で，圧痛，自発痛，透光性ともに認めず。右精索に大豆大，硬で，圧痛および周囲との癒着のない硬結3個を触知した。

検査成績：RBC $406 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，WBC $6,400/\text{mm}^3$ ，

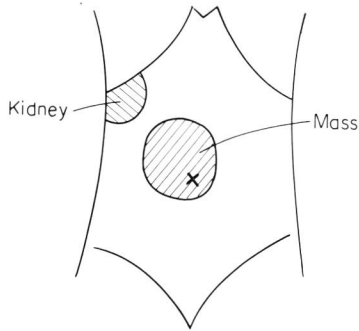


Fig. 1. Palpation of the abdomen revealed a mass.

Hb 12.5 g/dl, Ht 36.1%. ESR 1 時間値 15 mm, 2 時間値 28 mm, CRP (±). 肝機能検査では, GOT 13.1, GPT 6u, TP 6.5g/dl, A/G 1.59, ALP 6.0u, LDH 440u (LDH₁ 23.4%, LDH₂ 41.2%, LDH₃ 25.4%, LDH₄ 7.5%, LDH₅ 2.1%). 腎機能, 血清電解質値に異常を認めなかった。血清梅毒反応は陰性, AFP(—), 尿所見および沈渣に異常を認めなかった。

以上より右睾丸腫瘍および後腹膜リンパ節への転移との診断のもとにまず5月9日右高位除睾術を施行した。

摘除標本は重量 98 g, 弾性硬～軟骨硬, 剖面は黄白色で, 睾丸, 副睾丸はすべて腫瘍組織でおきかえられており, 正常組織は認めなかった (Fig. 2)。また精系血管に沿って転移と思われるリンパ節の腫大を認めた。このときの病理組織診断は seminoma であった。

続いて術後におこなった排泄性腎盂造影では右腎および上部尿管の外側偏位を認めた (Fig. 3)。リンパ管造影では右第4腰椎から中椎側にリンパ管の閉塞像を認めた。腹部大動脈造影では腫瘍による下方からの圧迫による右腎動脈の上方への偏位を認めた (Fig. 4)。腹部の超音波検査では, 臍上部横断面で, 後腹膜腔に下大静脈を前方に圧排する充実性の腫瘍を認めた。正中線右 3 cm の縦断面では, 下大静脈を前後からはさむ2つの腫瘍を認めた (Fig. 5)。リンパ管造影後の下大静脈造影では後腹膜腫瘍による著明な右方への圧排ならびに狭窄像を認めた (Fig. 6)。

6月5日全麻下に腹部正中切開で後腹膜腔の腫瘍剔除術を試みたが大動脈に沿うリンパ節は1塊となって小児頭大の腫瘍を形成しており, そのため摘除は不可能と判断されたので腫瘍の生検にとどめた。

組織学的には, HE 染色で, 大型の核小体をもつ, 比較的明瞭な大きな核のある, 細胞質の少ない細胞がびまん性に増殖しているのがみられた (Fig. 7)。鍍銀染

色では, 個々の腫瘍細胞の線維形成をする所見は乏しいが認められた (Fig. 8)。以上の所見より細網肉腫の未分化型, または diffuse histiocytic type の悪性リンパ腫と診断された。一方, 睾丸組織を retrospective に再検したところ seminoma ではなく細網肉腫であると確定診断された。

術後, 深部X線照射 2,000 rads と同時にエンドキサン 100 mg を毎日経口投与で45日間, および MMC 4 mg と 5FU 500 mg の点滴を週2回計10回おこなった。腫瘍は一時縮小がみられたが1カ月後再び腫大し, また両側鼠径部より大腿内側の表在性リンパ節の腫脹, および反対側の精索にも硬結を触知した。ついで右肺門部リンパ節および頸部表在性リンパ節もあいついで腫大し, 除睾術後4カ月目に悪液質にて死亡した。全身状態の悪化とともに LDH の推移をみると除睾術後1カ月で 1614 u, 死亡10日前では 5450 u と上昇した。剖検はできなかった。

考 察

睾丸に発症した細網肉腫は外国においても比較的まれとされており, 本腫瘍の睾丸腫瘍中に占める割合は 0.2～3.2%といわれている¹⁻³⁾。本邦でも 1944年に二神⁴⁾が報告して以来1964年まででは計9例にすぎなかったが1965年より毎年4, 5例ずつ報告がなされ, 現在本邦における報告例はわれわれの調べた範囲では自験例も含め71例となる。水谷ら (1975)⁵⁾ が52例を集計し, ついで三木ら (1977)⁶⁾ が10例を追加しており Table 1 にそれ以後の8例⁷⁻¹³⁾と自験例の計9例を掲げる。

組織学的には seminoma との鑑別が時にむずかしく^{1, 14)}, 当初 seminoma と診断されたもの, およびど

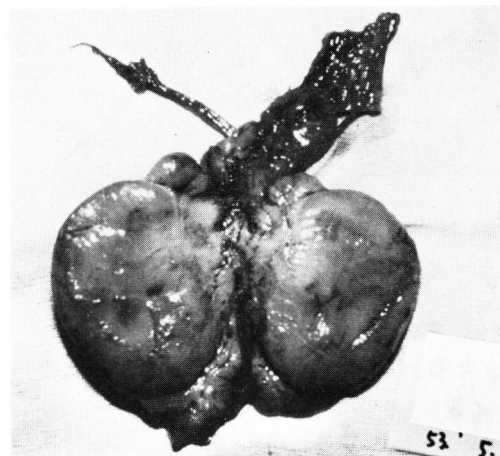


Fig. 2. Gross appearance of the testis.

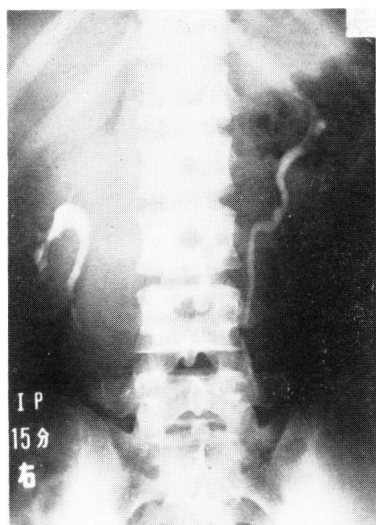


Fig. 3. IVP at 15 minutes.

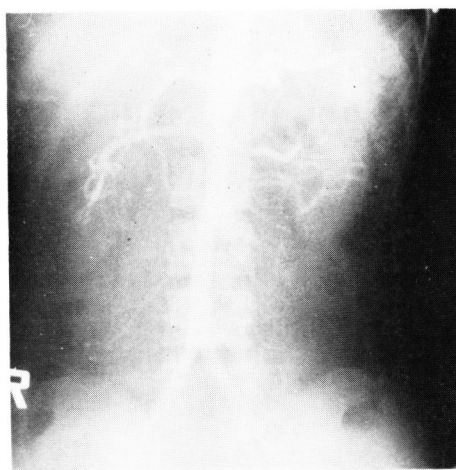


Fig. 4. AAG

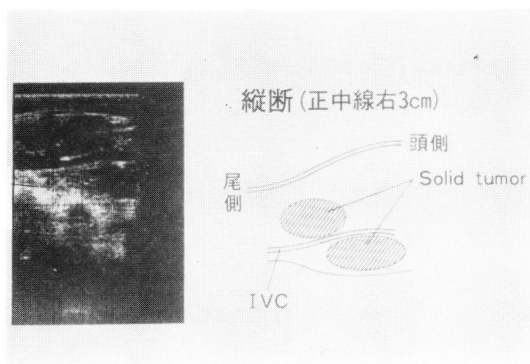


Fig. 5. Ultrasonogram

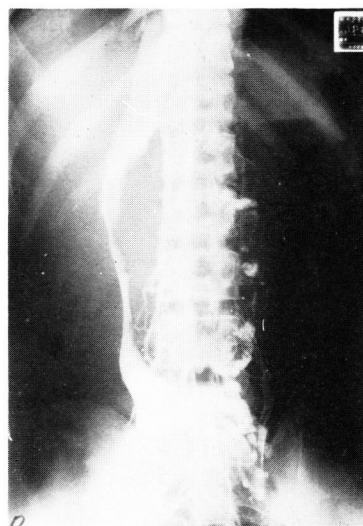


Fig. 6. Inferior vena cavography a few days after lymphangiography.

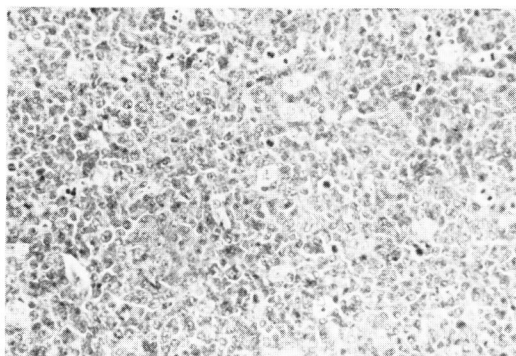


Fig. 7. Photomicrograph of the tumor. H&E, reduced from $\times 200$.

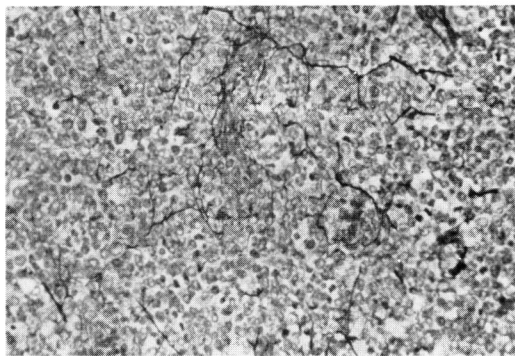


Fig. 8. Photomicrograph of the tumor. Silvering, reduced from $\times 200$.

Table 1. Reported cases of reticulum cell sarcoma of the testis in Japan.

No.	Author	Year	Age	Side	Treatment	Prognosis
63	天 野 ・ ほ か	1972	30	L→R	X・C	Dead
64	〃	〃	68	R	X	Dead
65	生 間 ・ ほ か	1977	26	R	X・C	Alive
66	平 山 ・ ほ か	〃	73	—	—	—
67	工 藤 ・ ほ か	〃	59	R	X・C	Alive
68	斎 藤 ・ ほ か	〃	66	R→L	X・R・C	Alive
69	大 原 ・ ほ か	1978	37	R	Y・R・C	Dead
70	湯 浅 ・ ほ か	〃	38	R	X・C	Alive
71	自 験 例	〃	39	R	X・R・C	Dead

X: high castration

Y: high castration with retroperitoneal lymphadenectomy

R: irradiation

C: chemotherapy

ちらかとも確定診断ができなかったものは自験例も含め12例^{15~23)}も報告されている。

臨床的には睾丸細網肉腫は精細胞由来の睾丸腫瘍と比べて、発生年齢、患側、臨床経過などの点で特徴がみられる。それらをつぎに列挙する。①発生年齢では老人に多いことで、60歳代が19例で最も多くついで50歳代であり両者をあわせて71例中34例、47.9%を占めている (Table 2)。一般に悪性リンパ腫の好発年齢も同様に60歳代に多い²⁴⁾。また本腫瘍は60歳以降の睾丸腫瘍の50%以上を占めているといわれる²⁵⁾。②患側で

Table 2. Age distribution

Age	Cases
0 ~ 9	4
10 ~ 19	3
20 ~ 29	4
30 ~ 39	8
40 ~ 49	8
50 ~ 59	15
60 ~ 69	19
70 ~ 79	6
80 ~ 89	2
Unknown	2
Total	71

は両側性にみられる頻度が高いことで左20例、右21例、初診時から両側のもの12例、初診時は一側であるが終局的に両側睾丸に腫瘍の波及したもの14例 (左→右が6例、右→左が8例)、不明4例で、67例中26例、38.8%を占めている (Table 3)。自験例でも除率術後3ヵ月目に反対側の精索に硬結がみられており、長期

Table 3. Side

Side	Cases
Left	20
Right	21
Bilateral on admission	12
Bilateral eventually	14
Unknown	4
Total	71

生存した場合両側性におこったであろうと思われる。また睾丸腫瘍のうち両側にみられる割合は0~4%であり、そのうち悪性リンパ腫は30~80%を占めている^{25~28)}。③臨床経過は seminoma と比べて非常に悪く、全身型の細網肉腫の1徴候として出現したのにすぎないといわれるほど、早晩全身のリンパ節や臓器に腫瘍が現われてくる。④外傷や停留睾丸との関係がみられないこと。⑤自験例ではみられなかったが、皮膚への転移所見として紫紅色の結節や潰瘍が多発してみられることがある^{28~30)}。その他、骨腫瘍の多発性、鼻腔・口蓋・眼窩の腫瘍発生が多いと報告されている²¹⁾。⑥睾丸腫瘍の経過とLDHとの関係において、seminoma ではLDH isoenzymeのうちLDH₁、LDH₂が上昇する^{31~33)}のに対し、悪性リンパ腫では他の癌と同様にLDH₂、LDH₃、LDH₄の上昇がみられる。自験例でもLDHの上昇をみたが、特にLDH₂、LDH₃が上昇しておりLDH isoenzymeはseminomaとの鑑別の一助になると考える。

細網肉腫が睾丸に原発するかについては、多中心性

におこるとする説が強いが、除睪術後数年たつにもかかわらず他の部位に腫瘍の発生がみられない症例²⁾のあること、および白血病例が非常に高度な睪丸への浸潤頻度を示すのに対し細網肉腫例では低頻度である³⁴⁾ことから細網肉腫を全身型と臓器限局型とに分け睪丸原発もあると考えられる。同様のことは消化管初発例や鼻咽頭初発例においてもいわれている²⁴⁾。また Gowing et al.¹⁴⁾ は睪丸原発とする条件として除睪術後数年間再発の兆しがなく患者が生存したら、その時点で回顧的にいえるとしている。本邦報告71例のうちでは、術前・術後を通じて睪丸に限局している症例は9例^{5,6,35~41)}みられる。一方術前は限局していたが術後他の部位にも腫瘍のみられた症例は24例、術前すでに他の部位に腫瘍のみられた症例は22例、既往に他の部位に細網肉腫があった症例は8例、不明は8例であった。自験例は初診時睪丸の他にすでに後腹膜リンパ節にも腫瘍を認めていたため全身型と考えられる一方、睪丸原発の high stage のものと考えられなくもない。いずれにしても睪丸原発かどうかは睪丸細網肉腫の報告例がより積み重ねられたのちに明らかになると思われる。

治療法としては高位除睪術、放射線療法、化学療法がある。高位除睪術は組織診断のためにも不可欠である。放射線療法は一時的に有効であるが再燃をくり返し結局はレ線に抵抗性を示してくる。化学療法は種々試みられているがいずれもあまり有効とは思えない。

予後は非常に悪くて、本邦報告例で術後経過のはっきりしている54例では発病後1年以内に27例 50%が、2年以内に7例13%が死亡しており、また除睪術後1年以内では32例59.3%が死亡している。3年以上の長期生存例は、睪丸に限局していて術後8年の現在も健在な笹野ら³⁶⁾の例と、リンパ管造影で鼠径部および後腹膜のリンパ腺に転移をみたが両側高位除睪術後 I¹³¹-ethiodol のリンパ管内照射療法を施行し10年後の現在も健在な森ら⁴²⁾の例の2例にすぎない。

結 語

39歳男子にみられた右睪丸細網肉腫の1例を報告するとともに、本邦における睪丸発症の細網肉腫例について若干の文献的考察をおこなった。

稿を終るに臨み、ご校閲を賜った恩師前川正信教授に深謝いたします。なお、本論文の要旨は日本泌尿器科学会第85回関西地方会において発表した。

文 献

1) Melicow, M. M.: J. Urol., 73: 547, 1955.

2) Cohen, B. B. et al.: Cancer, 8: 136, 1955.
 3) Wescott, J. W.: J. Urol., 96: 243, 1966.
 4) 二神由紀彦: 日泌尿会誌, 36: 392, 1944.
 5) 水谷修太郎・ほか: 泌尿紀要, 21: 391, 1975.
 6) 三木恒治・ほか: 泌尿紀要, 23: 695, 1977.
 7) 天野 滋・ほか: 臨泌: 26: 989, 1972.
 8) 生間昇一郎・ほか: 日泌尿会誌, 68: 319, 1977.
 9) 平山多秋・ほか: 日泌尿会誌, 68: 506, 1977.
 10) 工藤哲男: 日泌尿会誌, 68: 705, 1977.
 11) 斎藤 薫: 日泌尿会誌, 68: 1101, 1977.
 12) 大原 孝・ほか: 日泌尿会誌, 69: 951, 1978.
 13) 湯浅 誠・ほか: 日泌尿会誌, 69: 1115, 1978.
 14) Gowing, N. F. C.: Brit. J. Urol., 36(2)(Suppl.): 85, 1964.
 15) 稲田俊雄・ほか: 日泌尿会誌, 58: 562, 1967.
 16) 岡野慎一・ほか: 日泌尿会誌, 60: 1108, 1969.
 17) 高山秀則・ほか: 日泌尿会誌, 61: 621, 1970.
 18) 井川欣市・ほか: 癌の臨床, 17: 842, 1971.
 19) 阿曾佳郎・ほか: 日泌尿会誌, 62: 198, 1971.
 20) 古郷米次郎・ほか: 西日泌尿, 35: 711, 1973.
 21) 三谷玄悟: 癌の臨床, 15: 734, 1969.
 22) 峰山浩忠・ほか: ガン新病誌, 12: 111, 1972.
 23) 三谷玄悟・ほか: 日泌尿会誌, 66: 118, 1975.
 24) 白川 茂・ほか: 臨放, 18: 862, 1973.
 25) Collins, D. H. et al.: Brit. J. Urol., 36(Suppl.): 1, 1964.
 26) 古畑哲彦・ほか: 臨泌, 24: 55, 1970.
 27) 野辺 崇・ほか: 西日泌尿, 35: 217, 1973.
 28) Eckert, H. et al.: Brit. Med. J., 2: 891, 1963.
 29) Hotchkiss, R. S. et al.: J. Urol., 63: 1086, 1950.
 30) Altman, J. et al.: Arch. Dermatol., 82: 943, 1960.
 31) 河合恒雄・ほか: 日泌尿会誌, 67: 526, 1976.
 32) 森口隆一郎・ほか: 日泌尿会誌, 68: 222, 1978.
 33) Zondag, H. A.: Rhode Island Med. J., 47: 273, 1964.
 34) 天野 滋: 日泌尿会誌, 62: 325, 1971.
 35) 坂詰正己: 日泌尿会誌, 54: 1049, 1963.
 36) 笹野伸昭・ほか: 癌の臨床, 11: 231, 1963.
 37) 三国友吉・ほか: 泌尿紀要, 18: 743, 1972.
 38) 香川 征・ほか: 西日泌尿, 35: 223, 1973.
 39) 高塚慶次・ほか: 日泌尿会誌, 65: 259, 1974.
 40) 斎藤 稔・ほか: 日泌尿会誌, 65: 340, 1974.
 41) 山中雅夫: 日泌尿会誌, 66: 376, 1975.
 42) 森 義則・ほか: 泌尿紀要, 13: 149, 1967.

(1979年3月8日受付)