

幼少時の精巣固定術時に同定され得なかった 腹腔内精巣に発生した精巣腫瘍の1例

岩村 大径¹, 畠山 真吾², 福士 謙¹, 佐藤 天童¹
小島 由太¹, 村澤 洋美¹, 石村 大史¹, 米山 高弘¹
古家 琢也¹, 神村 典孝¹, 諸橋 聡子³, 鬼島 宏³
大山 力^{1,2}

¹弘前大学大学院医学研究科泌尿器科学講座

²弘前大学大学院医学研究科先進移植再生医学講座

³弘前大学大学院医学研究科病理生命科学講座

TESTICULAR TUMOR ARISING IN INTRA-ABDOMINAL TESTIS WHICH WAS NOT DETECTED AT PRIOR ORCHIDOPEXY: A CASE REPORT

Hiromichi IWAMURA¹, Shingo HATAKEYAMA², Ken FUKUSHI¹, Tendo SATO¹,
Yuta KOJIMA¹, Hiromi MURASAWA¹, Hirofumi ISHIMURA¹, Takahiro YONEYAMA¹,
Takuya KOIE¹, Noritaka KAMIMURA¹, Satoko MOROBASHI³,
Hiroshi KIJIMA³ and Chikara OHYAMA^{1,2}

The Departments of Urology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

The Departments of Advanced Transplant and Regenerative Medicine,

Hirosaki University Graduate School of Medicine

The Departments of Pathology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

A 35-year-old man with an intra-abdominal testicular tumor arising from the right unresolved intra-abdominal testis is reported. At 10 years old, left orchidopexy was successfully performed for bilateral undescended testes. However, the right testis was not detected during the operation, and it was diagnosed as vanishing testis. Twenty-five years later, he was referred to our hospital with the complaint of right lower abdominal pain. Computed tomography revealed huge pelvic tumors and bulky para-aortic lymph node swellings. Histopathologic examination of the needle biopsy specimen obtained from the pelvic tumor revealed seminomatous germ cell tumor. Taking the results with a tumor marker study into consideration, the patient was tentatively diagnosed with non-seminomatous germ cell tumor NSGCT (stage IIB) arising from the unresolved intra-abdominal testis or extragonadal germ cell tumor. He received 3 courses of bleomycin, etoposide, cisplatin (BEP), and 4 courses of VP-16, ifosfamide, cisplatin (VIP). After chemotherapy, we performed tumorectomy and retroperitoneal lymphadenectomy because tumor markers were normalized and 2-[¹⁸F] fluoro-2-deoxy-D-glucose positron emission tomography (FDG-PET)-CT revealed normalization. We identified the pelvic tumor as an intra-abdominal testicular tumor arising from right unresolved intra-abdominal testis. Pathological examination revealed no residual tumor cells. There has been no recurrence 17 months after surgery.

(Hinyokika Kiyo 59 : 189-193, 2013)

Key words : Intra-abdominal testis, Testicular tumor

緒 言 症 例

腹腔内精巣は精巣腫瘍の重要な危険因子である¹⁾。
幼少時の精巣固定術時に同定され得ず、25年後に進行
精巣腫瘍に進展した腹腔内停留精巣の1例を報告す
る。

患者 : 35歳, 男性
主訴 : 右下腹部痛
既往歴 : 10歳時に他院にて両側停留精巣に対して左
精巣固定術を施行。右精巣は同定不能で消失精巣と判
断された。
現病歴 : 2009年頃より下腹部膨隆あり, 2010年3月

右下腹部痛が出現し近医受診。CT で骨盤から腹腔内に至る巨大な腫瘍を指摘され当科紹介となった。

入院時現症：身長 173 cm, 体重 63 kg. 臍上部に腫瘤を触知した。右精巣は触知せず、左精巣は萎縮しており、両鼠径部に手術瘢痕を認めた。表在リンパ節は触知しなかった。

血液生化学検査：LDH 586 U/l (<229), α -fetoprotein (AFP) 86.7 mIU/ml (<9.6) と異常高値, human

chorionic gonadotropin (hCG) は 2.0 mIU/ml (<20) と正常範囲内であった。

画像所見：CT では骨盤から腹腔内に至る 147×106 mm および 129×93 mm の 2 個の腫瘍を認めた。また腰椎 L2, L3 レベルの腹部大動脈内外側に 65×54 mm, 73×62 mm の 2 つの傍大動脈リンパ節腫大を認めた。他の部位に転移は認めなかった (Fig. 1)。

生検所見：超音波ガイド下に骨盤内腫瘍の針生検を

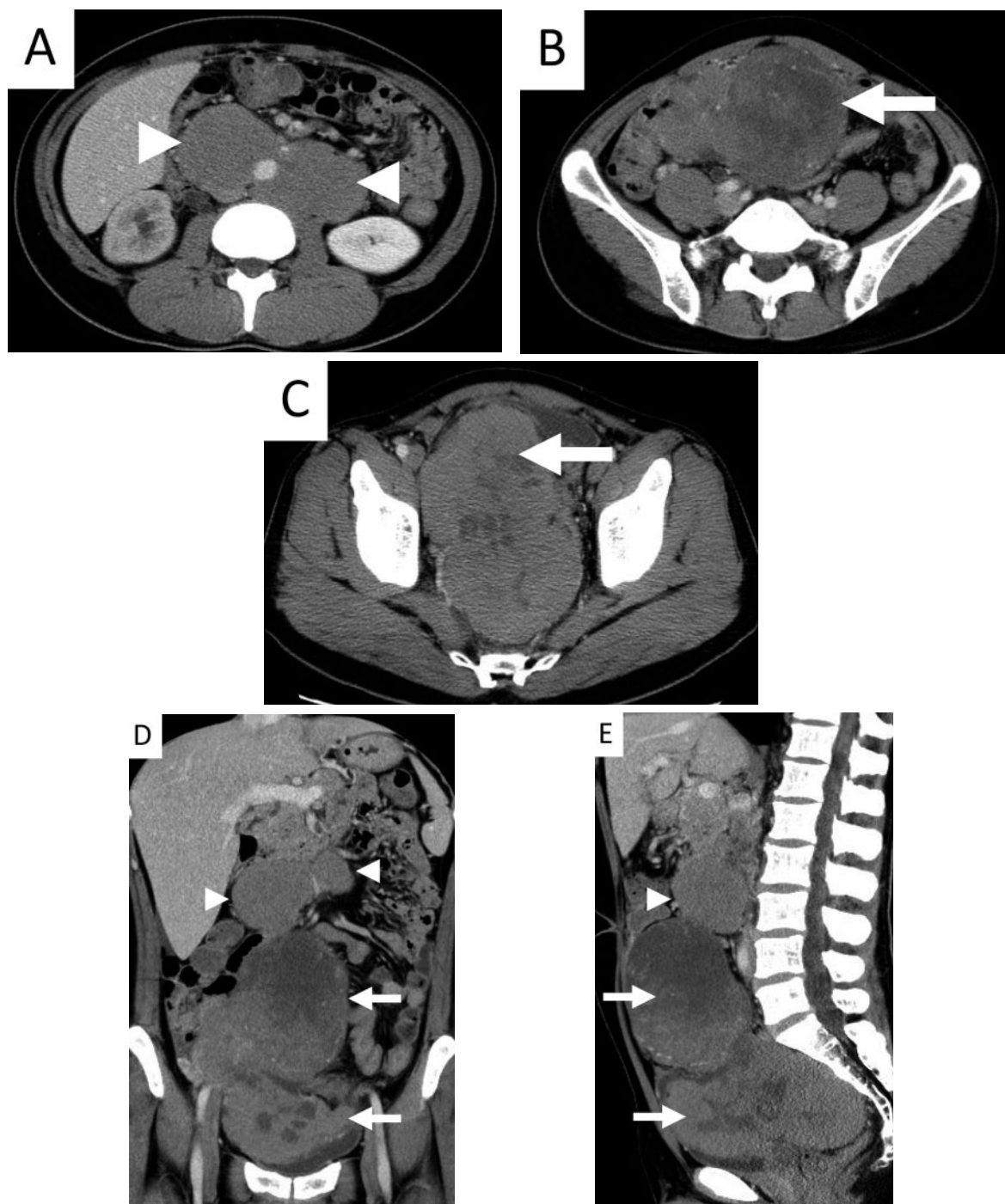


Fig. 1. Abdominal computed tomography showed para-aortic lymph node swelling (A, 64, 70 mm in diameter, arrow heads), intra-abdominal tumor (B, arrow) and pelvic tumor (C, arrow). D and E: coronal (D) and sagittal (E) plane (para-aortic lymph nodes; arrow heads, intra-abdominal tumor; upper arrow, pelvic tumor; lower arrow).

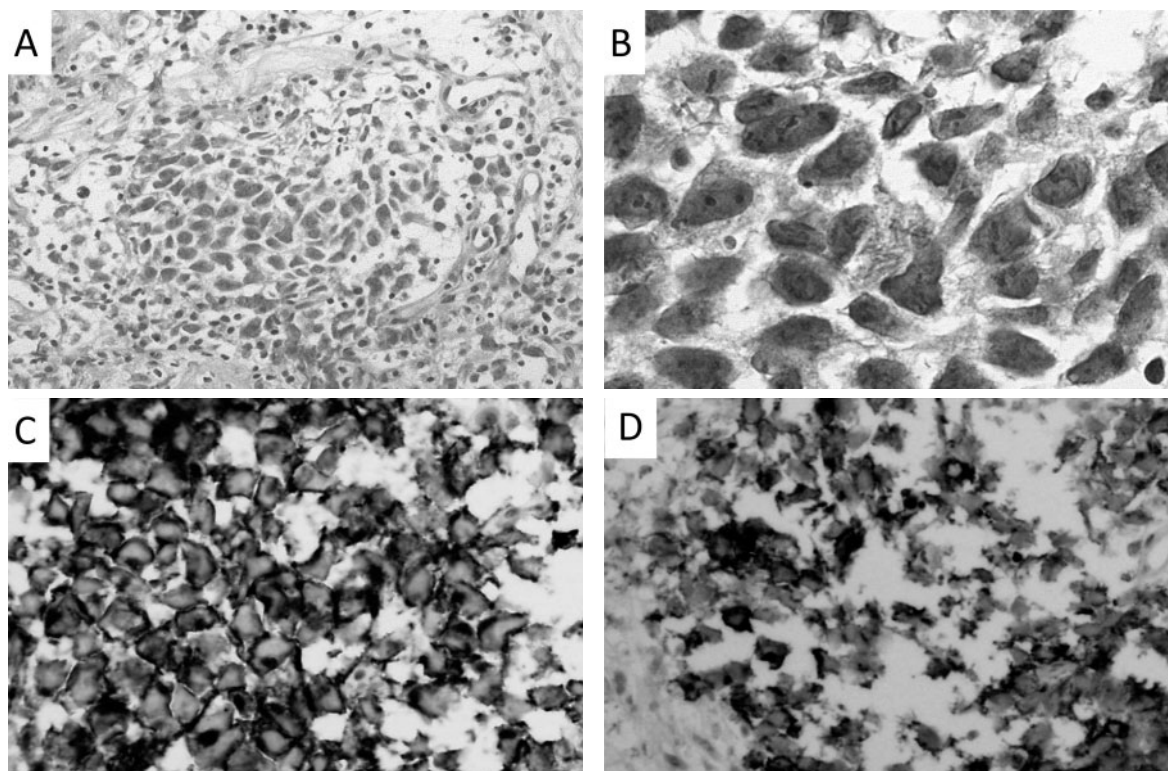


Fig. 2. Pathological findings of the intra-abdominal tumor. Histological examination of needle biopsy proved seminomatous germ cell tumor (HE stain) (A, $\times 100$, B, $\times 400$). Immunohistochemical studies showed c-kit (C) and placental alkaline phosphatase (PLAP) (D) were found to be positive ($\times 400$).

行い、充実性に増生する大型の腫瘍細胞とリンパ球を主体とする炎症細胞の浸潤を認めた (two cell pattern). 免疫染色にて c-kit と placental alkaline phosphatase (PLAP) が陽性で、セミノーマの診断となった (Fig. 2). AFP が異常高値であることから非セミノーマ成分の存在を考慮し、右腹腔内停留精巣に発生した非セミノーマ (stage IIB, IGCCC 分類 intermediate prognosis) もしくは性腺外胚細胞腫瘍と診断し全身化学療法を施行した.

治療経過: Bleomycin, etoposide, cisplatin (BEP) 療

法 3 コース終了時点で傍大動脈リンパ節47%縮小, 腫瘍は48%縮小し, AFP も正常化した. しかし LDH が 316 U/l と正常化せず 2-[^{18}F] fluoro-2-deoxy-D-glucose positron emission tomography (FDG-PET)-CT で膀胱右側に hot spot の残存を認めたため, セカンドラインのレジメンとして VP-16, ifosfamide, cisplatin (VIP) 療法を2コース追加した. VIP 2 コース後, 傍大動脈リンパ節は58%縮小, 腫瘍は59%縮小し LDH も正常化した. しかし, 膀胱右側にわずかな FDG-PET CT 上の hot spot が残存していたため VIP 療法をさらに2

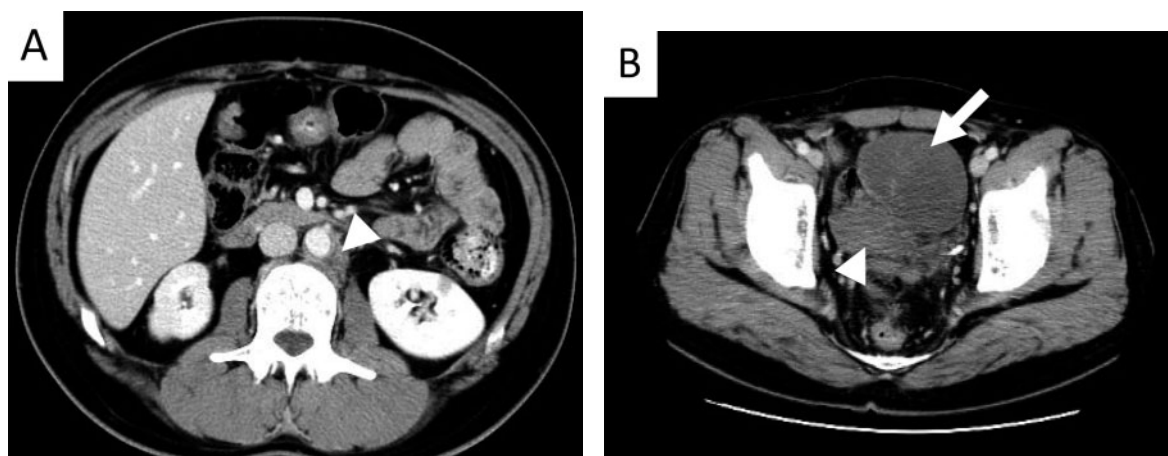


Fig. 3. Post-chemotherapy computed tomography showed partial response of para-aortic lymph nodes (A, arrow head), residual intra-abdominal (B, arrow) and pelvic tumor (B, arrow head).

コース追加した。VIP療法4コース後、傍大動脈リンパ節は63%縮小、腫瘍は59%縮小から変化しなかったが (Fig. 3), FDG PET-CT は陰性化した。この時点で右骨盤内の腫瘍の位置が移動することが判明し、この骨盤内の腫瘍は腫瘍化した右精巣である可能性が強く示唆された。2011年1月4日、残存腫瘍摘出術と後腹膜リンパ節郭清を施行した。

手術所見：下腹部正中切開で腹腔内に入った。膀胱後方に黄白色、表面平滑で周囲癒着のない手拳大の腫瘍を認め、腹腔内停留精巣に発生した精巣腫瘍と確定診断を下した (Fig. 4A)。腫大した右腹腔内精巣を摘除し、右総・外・内腸骨領域、下大静脈—右尿管間、腹部大動脈—左尿管間でリンパ節郭清を施行した。膀胱右側に右尿管下端、右尿管口、精管膨大部、精嚢を巻き込む残存腫瘍を認めたため、同部を一塊にして摘除し、右尿管—膀胱新吻合術を施行した (手術時間：4時間59分、出血量：730 ml)。

摘出標本：腫瘍化した右腹腔内精巣は 90×68 mm

で精索、精巣上部も認めた。断面は黄白色で大部分が瘢痕組織であった (Fig. 4B)。後腹膜リンパ節は線維化した瘢痕組織であった。

病理組織学的所見：右腹腔内精巣、リンパ節ともに炎症細胞浸潤を伴う瘢痕組織で満たされ、残存腫瘍を認めなかった (Fig. 5)。

術後経過：術後17カ月現在、再発なく経過観察中である。

考 察

停留精巣はその局在が高位にあるものほど悪性化しやすい。腹腔内精巣の悪性化率は鼠径部よりも4～6倍高く¹⁾、菊地らの停留精巣から発生した精巣腫瘍179例の集計では、腹部から発生したものが94例 (52.4%) と半数を占めている²⁾。

古目谷ら³⁾は本邦における腹腔内停留精巣から発生した成人の精巣腫瘍20例 (平均年齢36歳、平均腫瘍サイズ 15 cm) を集計し、症状出現まで時間がかかるた

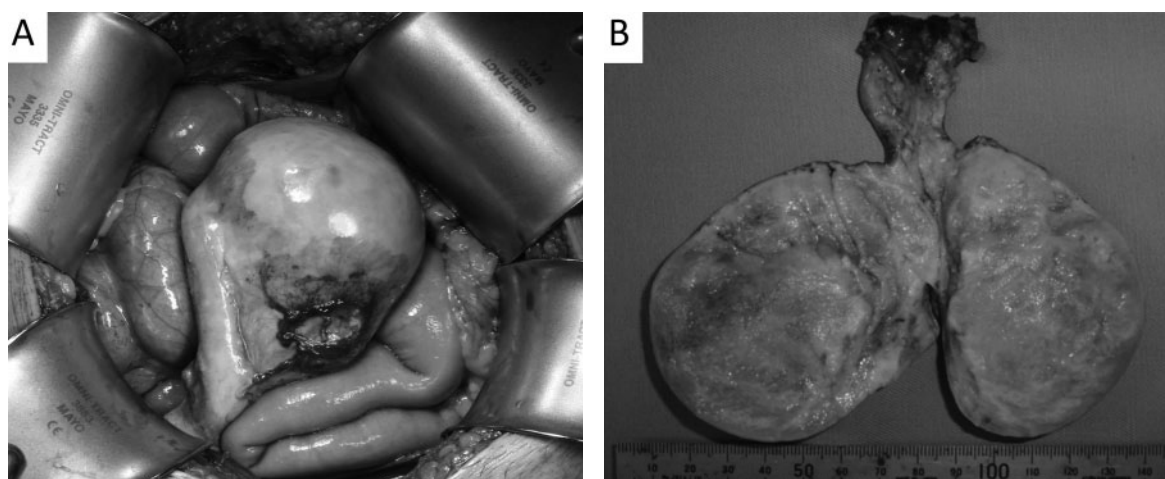


Fig. 4. Macroscopic appearance of intra-abdominal testicular tumor (A). The divided face showed yellowish-white tumor which was composed of scar tissue (B).

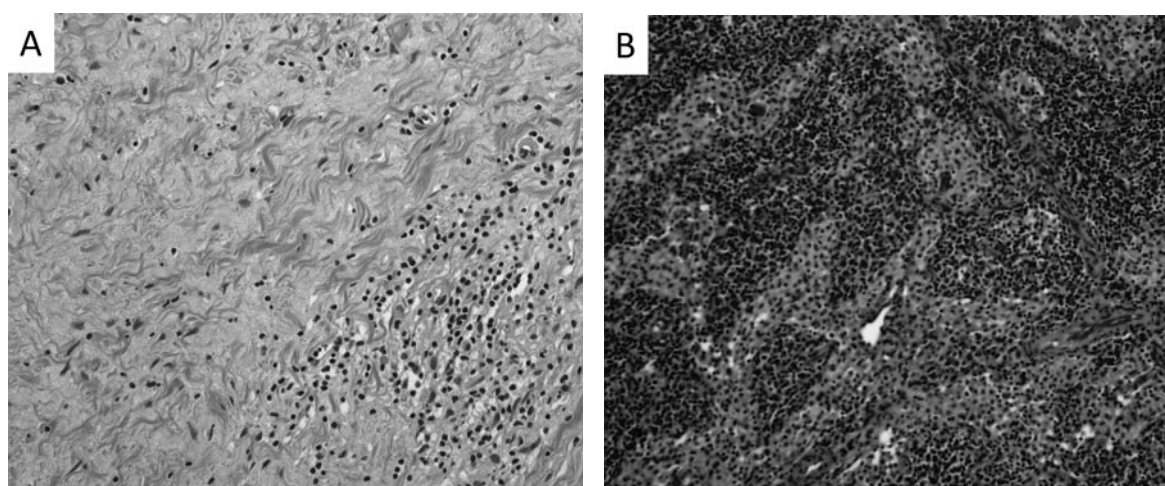


Fig. 5. Histological examination proved no residual tumor in intra-abdominal testicular tumor (A) and para-aortic lymph nodes (B).

め発見が遅れやすく巨大化する傾向があると報告している。しかし予後に関しては、腹腔内停留精巣から発生した精巣腫瘍は鞘膜に覆われたまま精索に沿って進展する傾向があるため、同病期で比較すると陰嚢内精巣から発生した精巣腫瘍と同等とも報告されている⁴⁾。

文献は古いですが、Brothers ら⁵⁾は腹腔内停留精巣に発生した精巣腫瘍13例中5例(38%)で腹腔内停留精巣の検索がなされていなかったと報告し、腹腔内停留精巣を消失精巣として診断し見逃す危険性を指摘している。消失精巣は片側で1/5,000、両側で1/20,000ときわめて少ない⁶⁾と報告されており、本症例でも25年前の精巣固定時に、腹腔内精巣の検索が不十分であったと考えられる。

腹腔内精巣の局在診断において非侵襲的検査としてはMRIが有効であり、近年ではgadolinium-enhanced magnetic resonance angiography (Gd-MRA)を用いることで感度96%、特異度100%と報告されている⁷⁾。一方、侵襲的検査としての腹腔鏡検査は、鼠径部試験切開にて精巣を確認できない症例の診断率が高く有用であるとの報告が多い⁸⁾。

対側精巣の腫瘍化について、Campbell⁹⁾は片側が腫瘍化した両側停留精巣では、対側精巣が腫瘍化する確率は25%と報告している。また異時性両側性精巣腫瘍の発生間隔は平均50.5~76カ月と比較的長く¹⁰⁻¹²⁾、5年以上経過したのちに発生する頻度は60%¹⁰⁾、10~15年後に発生する頻度は30%¹³⁾と報告されている。本症例は10歳時に左精巣固定術を施行されているため、今後は左精巣も長期に渡る厳重な経過観察が必要である。

結 語

幼少時の精巣固定術時に同定されなかった腹腔内精巣に発生した精巣腫瘍の1例を経験した。腹腔内精巣から発生した精巣腫瘍は発見が遅れやすく進行例が多いため、同定困難な場合は腹腔鏡などによる有無の確認が必須であると考えられた。

文 献

1) 吉田 修: 精巣腫瘍. ベッドサイド泌尿器科学,

- 診断・治療編. 吉田 修編. 改訂第3版. pp 478-487, 南江堂, 東京, 2000
- 2) 菊地悦啓, 入澤俊氏, 鈴木 仁, ほか: 停留睾丸に発生した睾丸腫瘍の2例. 泌尿紀要 **35**: 1791-1793, 1989
- 3) 古目谷 暢, 郷原絢子, 梅本 晋, ほか: 腹腔内停留精巣に発生した巨大精巣腫瘍の2例. 泌尿器外科 **24**: 369-372, 2011
- 4) Gauwitz MD and Zagars GK: Treatment of seminoma arising in cryptorchidism. Int J Radiat Oncol Boil Phys **24**: 153-159, 1992
- 5) Brothers LR 3rd, Weber CH Jr and Ball TP Jr: Anorchism versus cryptorchidism: the importance of a diligent search for intra-abdominal testes. J Urol **199**: 707-708, 1978
- 6) Borrow M and Gough M: Bilateral absence of testis. Lancet **1**: 366, 1970
- 7) Yeung CK, Tam YH, Chan YL, et al.: A new management algorithm for impalpable undescended testis with gadolinium enhanced magnetic resonance angiography. J Urol **162**: 998-1002, 1999
- 8) Diamond DA and Caldamone AA: The value of laparoscopy for 106 impalpable testes relative to clinical presentation. J Urol **148**: 632-634, 1992
- 9) Wein AJ, Kavoussi LR, Novick AC, et al.: Campbell-Walsh UROLOGY: 9th ed, volume 1, pp 900-901, SAUNDERS ELSEVIER, Philadelphia, 2007
- 10) Akdogan B, Divrik RT, Tombul T, et al.: Bilateral testicular germ cell tumors in Turkey: increase in incidence in last decade and evaluation on risk factors in 30 patients. J Urol **178**: 129-133, 2007
- 11) Holzbeierlein JM, Sogani PC and Sheinfeld J: Histology and clinical outcomes in patients with bilateral testicular germ cell tumors: the Memorial Sloan Kettering Cancer Center experience 1950 to 2001. J Urol **169**: 2122-2125, 2003
- 12) Geczli L, Gomez F, Bak M, et al.: The incidence, prognosis, clinical and histological characteristics, treatment, and outcome of patients with bilateral germ cell testicular cancer in Hungary. J Cancer Res Clin Oncol **129**: 309-315, 2003
- 13) Che M, Tamboli P, Ro JY, et al.: Bilateral testicular germ cell tumors. Cancer **95**: 1228-1233, 2002
- (Received on August 31, 2012)
(Accepted on October 12, 2012)