

精巣原発平滑筋肉腫の1例

戸邊 武蔵, 丹田 均, 加藤 修爾, 大西 茂樹
中嶋 久雄, 新田 俊一, 赤楳 圭吾, 佐藤 嘉一
芳賀 一徳, 内田 耕介, 半澤 辰夫
三樹会病院

PRIMARY TESTICULAR LEIOMYOSARCOMA

Musashi TOBE, Hitoshi TANDA, Shuji KATO, Shigeki ONISHI,
Hisao NAKAJIMA, Toshikazu NITTA, Keigo AKAGASHI, Yoshikazu SATO,
Kazunori HAGA, Kohsuke UCHIDA and Tatsuo HANZAWA
The Sanjukai Hospital

Leiomyosarcoma is a malignant soft-tissue cancer arising from tissues containing smooth muscle. It commonly occurs in the gastrointestinal system and retroperitoneum, but is rare in the genito-urinary system. We experienced a case of primary testicular leiomyosarcoma. A 71-year-old man presented with painless swelling of the right scrotal contents for 4 months. A high orchiectomy was performed. Histological examination revealed primary testicular leiomyosarcoma. The patient did not receive any adjuvant therapy. Seven months after the operation, there has been no recurrence. Cases of primary intratesticular leiomyosarcoma are rare. To the best of our knowledge, only sixteen cases have been reported in the literature.

(Hinyokika Kiyo 56 : 535-538, 2010)

Key word : Primary testicular leiomyosarcoma

緒 言

平滑筋肉腫は、平滑筋を含む組織から発生する悪性軟部腫瘍である。軟部肉腫の5~10%を占め、好発部位は、消化器や後腹膜であるが、泌尿生殖器に発生することは稀である。なかでも、精巣原発のものは稀であり、われわれが調べた限りでは、現在まで16例の報告を数えるのみである¹⁻¹⁵⁾。今回われわれは17例目となる精巣原発平滑筋肉腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 71歳, 男性

現病歴 : 2009年4月より、左陰嚢内容の腫大を自覚したが、放置していた。2009年7月次第に増大してきたため、当院を受診した。

既往歴 : 69歳, 心筋梗塞, 70歳, 胃癌にて胃切除術を施行。病理組織診断は、Tubular Adenocarcinoma (moderately differentiated type) で、leiomyosarcoma の成分は含まれていなかった。

家族歴 : 特記すべき事項なし

入院時現症 : 身長 164 cm, 体重 56 kg, 血圧 120/80 mmHg, 脈拍は68回/分, 整。

左精巣は鶏卵大に腫大し硬く触知した。透光性は認

められなかった。

入院時検査所見 (Table 1) : 血液検査および尿検査上明らかな異常所見は認められなかった。腫瘍マーカーは、hCG- β $\leq$ 0.1 ng/ml (基準値0.1以下), AFP 4 ng/ml (0~10), LDH 243 IU/l (100~245), IL-2R 436 U/ml (145~519) とすべて基準範囲内であった。

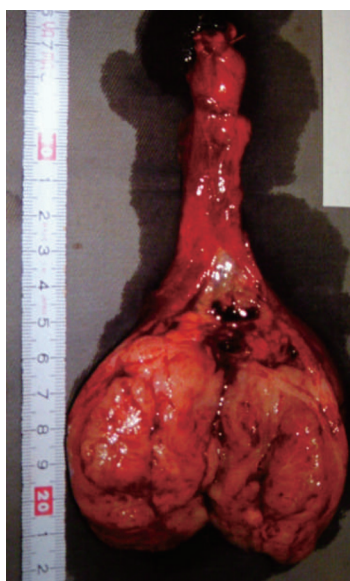
画像所見 : 超音波検査にて、右精巣は腫大し、内部不均一で、ドプラーにて血流を認めた。胸部および腹部CTにて、明らかな転移を示唆する所見は認められなかった。

経過 : 右精巣腫瘍の診断にて、2009年8月6日 左高位精巣摘除術を施行した。左精巣は長径約 7 cm 大に腫大し、断面は出血を伴う白色調の腫瘍で充満していた (Fig. 1)。術後経過は良好で、術後2週間後に退院となった。

病理組織 (Fig. 2) : 紡錘形腫瘍細胞が索状に増殖し、核の大小不同および mitosis を10個以上/10高倍視野に認めた。免疫染色では、 α -smooth muscle actin (SMA) が陽性、S100 タンパク・CD34・c-kit は陰性、MIB-I 陽性率が30%以上であった。正常の精巣組織は認められなかった。精巣上体および精索には異常を認めず、精巣原発の平滑筋肉腫と診断された。術後、追加治療は施行せず、現在、外来にて経過観察中であるが、術後7カ月たった現在、明らかな再発は認められ

Table 1. Cases of primary testicular leiomyosarcoma

No	Case	Age	Year	Treatment	Follow-up	Outcome
1	Yachia et al. ¹⁾	50Y	1989	Orchiectomy	2Y	No recurrence
2	Pellice et al. ²⁾	37Y	1994	Orchiectomy	2Y	No recurrence
3	Washecka et al. ³⁾	47Y	1996	Orchiectomy	6Y	No recurrence
4	Washecka et al. ³⁾	40Y	1996	Orchiectomy	6Y	No recurrence
5	Froehner et al. ⁴⁾	32Y	1999	Orchiectomy + RPLND	6Y7M	No recurrence
6	Hachi et al. ⁵⁾	70Y	2002	Orchiectomy	1Y2M	Death from pulmonary metastasis
7	Ali et al. ⁶⁾	65Y	2002	Orchiectomy	1Y	No recurrence
8	Sattary et al. ⁷⁾	27Y	2003	Orchiectomy	2Y6M	No recurrence
9	Singh et al. ⁸⁾	26Y	2004	Orchiectomy	—	No recurrence
10	Wakhlu et al. ⁹⁾	8M	2004	Orchiectomy + Chemotherapy	1Y	No recurrence
11	Takizawa et al. ¹⁰⁾	76Y	2005	Orchiectomy	1Y	No recurrence
12	Canales et al. ¹¹⁾	30Y	2005	Orchiectomy	6M	No recurrence
13	Borges et al. ¹²⁾	19Y	2007	Orchiectomy	1Y4M	Recurrence of retroperitoneum
14	Kumar et al. ¹³⁾	65Y	2009	Orchiectomy	6M	No recurrence
15	Raspolini et al. ¹⁴⁾	77Y	2009	Orchiectomy	1Y	No recurrence
16	Yoshimine et al. ¹⁵⁾	73Y	2009	Orchiectomy + Chemotherapy (CyVADIC)	9M	Multiple metastases in the lung, para-aortic lymph node
17	Present case	71Y	2009	Orchiectomy	7M	No recurrence

**Fig. 1.** Gross specimen showing a testicular tumor, measuring 6×5×5 cm.

ていない。

考 察

高齢者の精巣腫瘍で頻度の高い組織型として、悪性リンパ腫や精母細胞性セミノーマが挙げられるが、本症例は、いずれの腫瘍マーカーも正常であり、病理組織は平滑筋肉腫であった。

平滑筋肉腫は軟部肉腫の1つで、平滑筋細胞由来の腫瘍である。軟部肉腫の5～10%を占めている。好発部位は、胃・腸管膜、後腹膜、子宮などであるが、平

滑筋は消化管、気道、泌尿生殖器、脈管など管壁の主要な構成成分であり、これらのいずれにも発生しうる。

男性泌尿生殖器の平滑筋肉腫は、比較的稀であるが、精巣上体や精索などの傍精巣平滑筋肉腫は過去に100例ほど報告されている。しかし、精巣原発平滑筋肉腫の報告は、過去に16例であり、本症例は17例目である¹⁻¹⁵⁾ (Table 1)。

転移例としては、小腸原発のものが報告されており、好発部位でもある消化器原発の可能性についても精査が必要である。

患者の年齢は生後8カ月から77歳まで幅広く、本症例のような70歳以上の症例も過去に4例報告されている^{5, 10, 14, 15)}。

病理組織診断における平滑筋肉腫の特徴としては、類紡錘形の細胞が高い細胞密度で多方向に錯走し、個々の細胞の核異型は高度であることが挙げられる。免疫組織化学的染色では、 α -平滑筋アクチン・ビメンチンなどが陽性である。

精巣原発平滑筋肉腫は、精細管の固有筋層より発生すると考えられている。リスクファクターとして、高容量のタンパク同化ステロイド⁴⁾や慢性炎症⁶⁾、放射線照射など¹¹⁾が指摘されているが、本症例はいずれも該当しなかった。

治療は、化学療法や放射線療法は無効であると考えられており、腫瘍の外科的切除が主体である。過去に報告された症例すべてに精巣摘除術が施行されている。しかし、血行性転移により肺・肝などに、リンパ

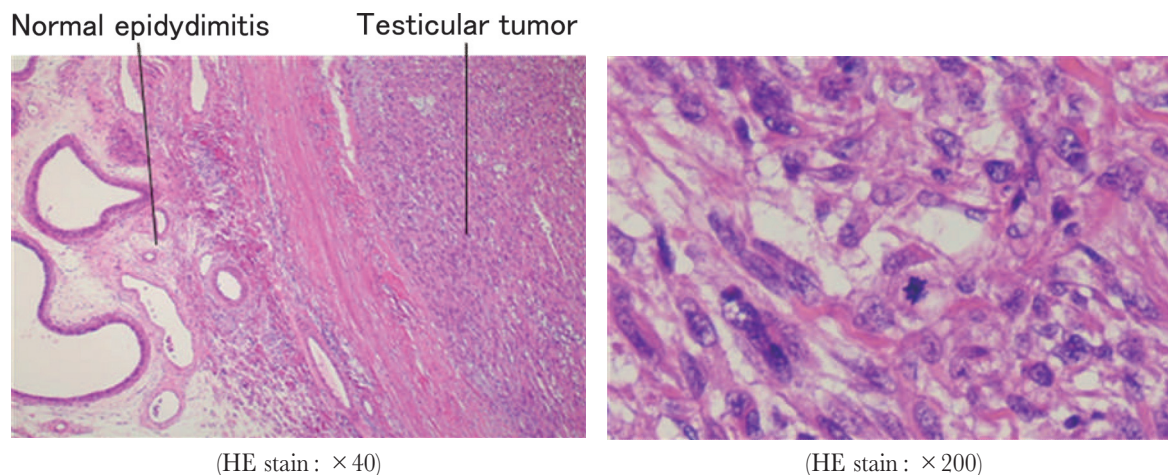


Fig. 2. Histological examination of the tumor. The tumor cells were positive for α -smooth muscle actin (α -SMA).

行性転移により後腹膜リンパ節などに転移することがあり、転移を来した症例の予後は不良である。

過去に報告された16例のうち、13例は再発が認められていないが、そのうち精巣摘除後に、後腹膜リンパ節郭清を施行した症例が1例ある⁴⁾。肺転移で精巣摘除14ヵ月後に死亡した例⁶⁾、後腹膜リンパ節に再発を来したため、後腹膜リンパ節郭清術が施行された症例¹³⁾、精巣腫大を認めてから6年後に、両肺、傍大動脈リンパ節および胃に多発性転移を認め、CyVADIC 化学療法が施行された症例¹⁵⁾がそれぞれ1例ずつ報告されているが、いずれも予後が不良である。

本症例も現在のところ明らかな再発を認めていないが、再発した場合の治療は困難である。

今後、新たな化学療法などの開発が望まれる。

結 語

17例目の報告となる、精巣原発平滑筋肉腫の1例を経験した。

文 献

- 1) Yachia D and Auslaender L: Primary leiomyosarcoma of the testis. *J Urol* **141**: 955-956, 1989
- 2) Pellice C, Sabate M, Combalia, et al.: Leiomyosarcoma of the testis. *J Urol (Paris)* **100**: 46-48, 1994
- 3) Washecka RM, Mariani AJ, Zuna RE, et al.: Primary testicular sarcoma: immunohistochemical ultrastructural and DNA flow cytometric study of three cases with a review of the literature. *Cancer* **77**: 1524-1528, 1996
- 4) Froehner M, Fischer R, Leike S, et al.: Intratesticular leiomyosarcoma in a young man after high dose doping with Oral-Turinabol: a case report. *Cancer* **86**: 1571-1575, 1999
- 5) Hachi H, Bougtab A, Amhajji R, et al.: A case report of testicular leiomyosarcoma. *Med Trop* **62**: 531-

533, 2002

- 6) Ali Y, Kehinde EO, Makar R, et al.: Leiomyosarcoma complicating chronic inflammation of the testis. *Med Prin Pract* **11**: 157-160, 2002
- 7) Sattary M, Hazraty B and Saraii MB: Primary pure testicular low-grade leiomyosarcoma. *Iran J Med Sci* **28**: 48-50, 2003
- 8) Singh R, Chandra A, O'Brien TS. Primary intratesticular leiomyosarcoma in a mixed race man: a case report. *J Clin Pathol* **57**: 1319-1320, 2004
- 9) Wakhlou A and Chaudhary A: Massive leiomyosarcoma of the testis in an infant. *J Pediatr Surg* **39**: e16-17, 2004
- 10) Takizawa A, Miura T, Fujinami K, et al.: Primary testicular leiomyosarcoma. *Int J Urol* **12**: 596-598, 2005
- 11) Canales BK, Lukasewycz SJ, Manivel JC, et al.: Post-radiotherapy intratesticular leiomyosarcoma. *Urology* **66**: 657, 2005
- 12) Borges RP, Vila F, Cavadas J, et al.: Primary testicular leiomyosarcoma. *Acta Urológica* **24**: 45-47, 2007
- 13) Kumar M, Patne SC, Kumar S, et al.: Primary high-grade testicular leiomyosarcoma. *Indian J Pathol Microbiol* **52**: 91-93, 2009
- 14) Raspollini MR, Stomaci N, Ringressi A, et al.: Primitive testicular leiomyosarcoma: an immunohistochemical and ultrastructural study with a review of the literature. *Pathol Oncol Res* **16**: 177-179, 2010
- 15) Yoshimine S, Kono H, Nakagawa K, et al.: Primary intratesticular leiomyosarcoma. *Can Urol Assoc J* **3**: 74-76, 2009

(Received on March 4, 2010)

(Accepted on May 18, 2010)

Editorial Comment

平滑筋肉腫が精巣に発生するのは非常に珍しいため、その組織学的発生部位については定かではない

が、精細管の平滑筋、精巣内血管の平滑筋、奇形腫の一部の悪性化が考えられている。精巣以外の原発巣から精巣に移転することもありうるため、全身の検索が必要である。

神戸市立医療センター中央市民病院
川喜田 睦 司