

成人男性の精巣に発生した成熟奇形腫の1例

今西 賢悟, 畠山 真吾, 岡本 哲平, 鈴木裕一郎
 杉山 尚樹, 山本 勇人, 工藤 茂将, 米山 高弘
 橋本 安弘, 古家 琢也, 神村 典孝, 大山 力
 弘前大学大学院医学研究科泌尿器科学講座

ADULT MATURE TERATOMA OF THE TESTIS : A CASE REPORT

Kengo IMANISHI, Shingo HATAKEYAMA, Teppei OKAMOTO, Yuichiro SUZUKI,
 Naoki SUGIYAMA, Hayato YAMAMOTO, Shigemasa KUDO, Takahiro YONEYAMA,
 Yasuhiro HASHIMOTO, Takuya KOIE, Noritaka KAMIMURA and Chikara OHYAMA
The Department of Urology, Hirosaki University, Graduate School of Medicine

A 33-year-old man visited our hospital complaining of painless left scrotal swelling. Serum alpha-fetoprotein (AFP) and human chorionic gonadotropin-beta (HCG- β) were within normal range. Computed tomography revealed a heterogeneous tumor in the left scrotum and para-aortic lymph node swelling. We diagnosed the tumor as stage IIA testicular cancer and performed left high inguinal orchiectomy. Histopathological diagnosis was mature teratoma with no associated malignant germ cell tumor. The patient was followed-up without adjuvant chemotherapy because the size of para-aortic lymph nodes was remarkably reduced one month after the orchiectomy. The patient must be followed up carefully for possible metastasis. (Hinyokika Kiyo 59 : 57-60, 2013)

Key words : Testicular tumor, Mature teratoma, Adult

緒 言

奇形腫とは、異所性の内、外、中胚葉の組織成分より構成される腫瘍であり、その成熟度により成熟奇形腫、あるいは未熟奇形腫に分類される¹⁾。成人男性の精巣に発生する奇形腫は混合性胚細胞腫瘍の成分としては比較的良好と認められるものの、単一組織で構成されることは稀であり本邦ではこれまで12例の報告をみるにすぎない。

今回われわれは、成人男性に発生した成熟奇形腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：33歳，男性

主訴：左陰囊内容腫大

既往歴・家族歴：特記事項なし

現病歴：2007年4月頃より、無痛性の左陰囊腫大を自覚。10月に近医泌尿器科受診し、左精巣腫瘍疑いで当科受診となった。

入院時現症：身長 171.4 cm, 体重 66.6 kg, 血圧 122/74 mmHg, 脈拍整。左陰囊内に小児頭大、弾性硬の腫瘍を触知した。腫瘍は陰囊皮膚と癒着しており一部で自壊していた。精索および右陰囊に異常は認めなかった。鼠径部リンパ節は触知しなかった。

入院時検査成績：末梢血検査では白血球 (WBC) 8,070/ml, 生化学検査では C-reactive protein (CRP)

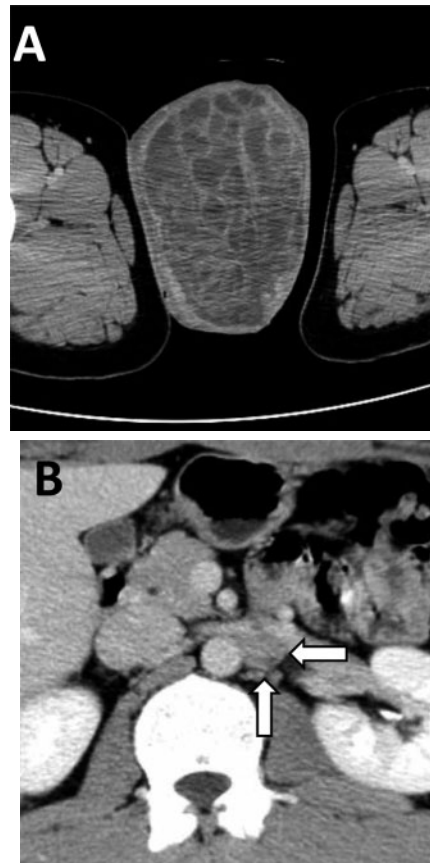


Fig. 1. CT showed a heterogeneous tumor in the left scrotum (A) and an enlarged para-aortic lymph node (B, arrows).

3.2 mg/dl と炎症反応の軽度上昇を認めるほかは異常を認めなかった。腫瘍マーカーは LDH 155 U/l, AFP 2 ng/ml (<10 ng/ml), HCG- β <1.2 mIU/ml と正常範囲内であった。

画像所見：CT 検査では、左精巣に径 142×97 mm, 内部不均一に造影される腫瘍を認め (Fig. 1A), 径 14.7 mm の傍大動脈リンパ節の腫大を認めた (Fig. 1B)。肺など他臓器への転移は認めなかった。

以上より左精巣腫瘍, 病期 IIA と診断し, 2007年10月11日, 脊椎麻酔下にて左高位精巣摘除術を施行した。

手術所見：脊椎麻酔下, 仰臥位にて手術を開始した。精索および精管を結紮切離した後, 左精巣を剥離し創外へ脱転した。腫瘍は陰嚢皮膚に露出しており同部位で強固に癒着していた。自壊部の陰嚢皮膚とともに腫瘍を一塊にして摘除した。手術時間は1時間55分, 出血量は180 g であった。

摘出標本：腫瘍は径 14.2×9.7 cm, 内部は嚢胞状

の成分が多くを占めていたが一部白色で充実性の部位も認めた (Fig. 2)。

病理組織所見：角化扁平上皮による表皮組織, 腺管組織, 平滑筋組織, 軟骨組織が認められた。神経組織は未熟, あるいは成熟のいずれも認められず, その他

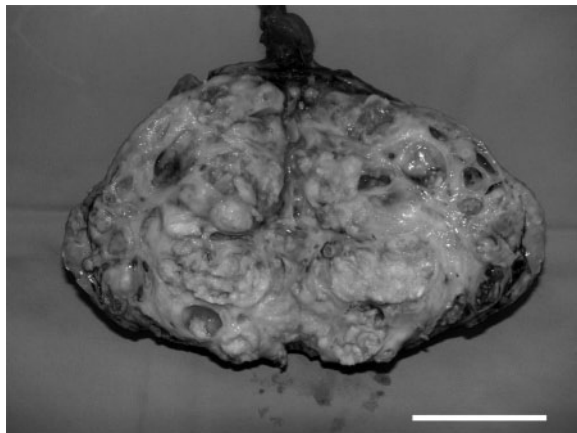


Fig. 2. Macroscopic appearance of the tumor in the left testis. The tumor demonstrated a whitish-gray cut surface with cystic nodules (scale bar: 5 cm).



Fig. 3. The tumor included the components with keratinizing squamous epithelium, glandule, smooth muscle, and cartilage, which are consistent with mature teratoma (H & E stain, $\times 100$).

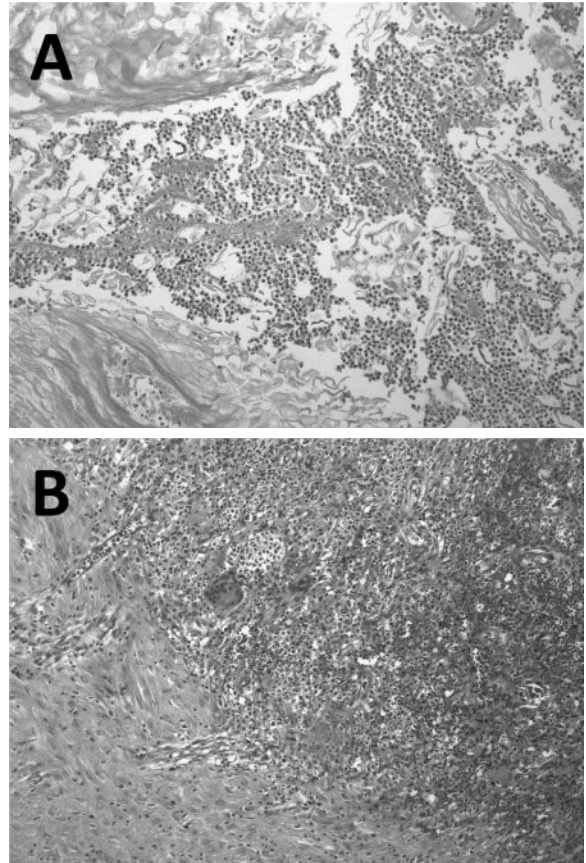


Fig. 4. Microscopic findings of scrotal skin. Necrotizing reaction (A), leukocyte infiltration and adhesion formation (B) were observed between the scroum and the testicular tumor.

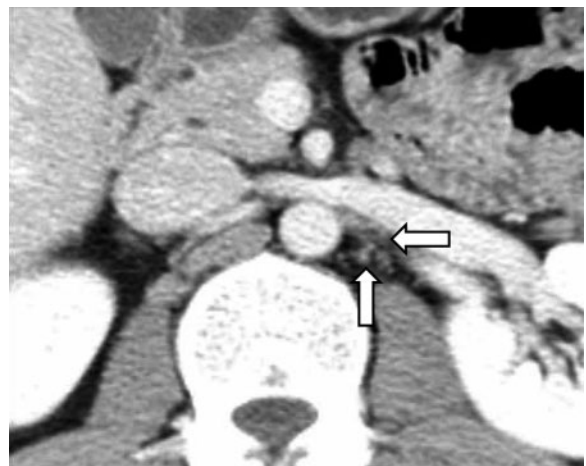


Fig. 5. CT showed the para-aortic lymph node swelling was remarkably reduced one month after the orchiectomy (arrows).

の胚細胞腫瘍成分も認めなかった (Fig. 3). また, 一部では壊死性変化がみられ (Fig. 4A), 陰嚢表皮は白血球が浸潤しており, 強固な癒着が確認された (Fig. 4B).

術後経過: 術前 CT にて傍大動脈リンパ節の腫大を認め病期 IIA と診断したが, 術後 1 カ月目に撮影した腹部 CT にて傍大動脈リンパ節は著明に縮小していた (Fig. 5). 血液検査上も術後は WBC 8,630/ml, CRP 9.1 mg/dl と炎症反応上昇を認めたが, 1 カ月後には WBC 5,440/ml, CRP <0.1 mg/dl と炎症は沈静化していた. また術後 3 週目で撮影した ^{18}F -fluoro-2-deoxyglucose positron-emission tomography (FDG-PET) も集積を認めず陰性であった. 以上の所見から左精巣内の壊死所見や左精巣周囲の炎症所見が高度であったことも踏まえ, 傍大動脈リンパ節腫大は炎症に起因する可能性が高いと考えられた. 以上より傍大動脈リンパ節の増大が見られた段階で積極的治療を検討することにし, 当面は CT で経過観察することとした. そのため臨床病期診断は I 期と修正した. 現在外来にて経過観察中であるが, 術後 4 年 5 カ月経過した現在, 転移・再発は認めていない.

考 察

精巣腫瘍は, 本邦では尿路悪性腫瘍の 3 % を占める疾患で, 10 万人に 1 人の確率で罹患するとされる¹⁾. 奇形腫は小児期によくみられる胚細胞腫瘍であるが, 乳幼児期にみられる場合, 明らかな悪性成分を含まない限り経過は良好である²⁾. 一方成人に発生した奇形腫は, 精巣腫瘍の成分としては比較的良く認められるものの, 原発精巣腫瘍の 2 ~ 6 % を占めるのみである^{1,3)}. その内単一組織で構成される成熟奇形腫は稀な疾患であり, われわれの調べた限りではこれまで 12 例の報告をみるにすぎない.

奇形腫は組織学的には良性と考えられているが, 成人発生の場合, その成熟度に関わらず初診時にすでに転移を有する症例が 15 ~ 46 % あると報告されている^{1,4,5)}. 本邦 12 例中有転移症例は 1 例のみ (7.7 %) でその予後は 9 カ月と不良であったが, 他の stage I 症例は再発を認めていない (Table 1). 組織学的に成熟しているにも関わらず転移をきたす機序として, 1) 不適切な組織サンプリングにより単一型奇形腫と誤診断される, 2) 奇形腫を含む混合型胚細胞腫の転移巣では DNA 異常を含む悪性の奇形腫が含まれている可能性がある, 3) 奇形腫に含まれる上皮内癌 (CIS) は 44 ~ 86 % と比較的高頻度に認められるため転移能を有する, 4) 奇形腫自体が転移能を有する, などが考えられている^{6,7)}. そのため他悪性成分の混在, CIS の存在を病理学的に広範囲に検索する必要がある. また腫瘍の潜在的転移能を考慮し, CT などでの厳重な経過観察が必要である.

奇形腫特有の腫瘍マーカーはないが, AFP, β -HCG が組織学的に検索しえなかった悪性成分の検出に有効とされており腫瘍マーカーでの経過観察も必要である⁶⁾. 治療は, 臨床病期 I では高位精巣摘除術, 病期 II 以上では化学療法, リンパ節郭清が一般的である. Porcaro らによると, 精巣成熟奇形腫の転移巣に対する治療として放射線・化学療法はほとんど効果を認めず, 後腹膜リンパ節郭清術のみが唯一予後を改善したと報告している⁸⁾. 一方成熟奇形腫の発育は遅く, 10 年後に転移が発見されることも稀ではない. 転移巣としては傍大動脈リンパ節 (100 %) が最も多く, 次いで肝 (83 %), 肺 (72 %), 骨 (36 %) などとされている¹⁾.

また, 初回の病期診断における I, II 期のセミノーマを対象にした FDG-PET の感度, 特異度は 66, 98 %, 陽性的中率, 陰性的中率は 95, 78 % と報告⁹⁾さ

Table 1. Cases of adult pure teratoma of the testis reported in Japan

症例	著者	年齢	大きさ (mm)	病期	治療法	予後	Follow-up (月)
1	加藤ら (1972)	24	不明	不明	High orchiectomy	不明	
2	小泉ら (1989)	27	不明	不明	High orchiectomy	不明	
3	西村ら (1991)	30	不明	IIIA	High orchiectomy, chemotherapy, RPLND	死亡	9
4	増田ら (1993)	43	70×65×60	I	High orchiectomy	再発なし	24
5	酒井ら (1997)	67	不明	I	High orchiectomy	不明	
6	米田ら (1991)	35	90	I	High orchiectomy	再発なし	29
7	高島ら (2000)	59	75×55×50	I	High orchiectomy	再発なし	5
8	柴田ら (2000)	42	15×12	I	High orchiectomy	再発なし	12
9	土屋ら (2001)	46	105×52	I	High orchiectomy	再発なし	6
10	原ら (2006)	28	70×60×20	I	High orchiectomy	再発なし	18
11	平ら (2004)	46	22×20×10	I	High orchiectomy	不明	
12	河原ら (2009)	31	50×30×30	I	High orchiectomy	再発なし	11
13	自験例	33	147×97	I	High orchiectomy	再発なし	53

* RPLND; Retroperitoneal lymph node dissection.

れているが、非セミノーマでは、感度39%、特異度17%と低い¹⁰⁾。奇形腫の場合はCTで指摘された腫瘍へのFDG集積はみられないとする報告がある⁸⁾。一般的に炎症局所では活性化リンパ球、マクロファージ、顆粒球にFDGが集積しやすく陽性になりやすいとされている¹²⁾。本症例も炎症性リンパ節腫大であればFDGが集積する可能性が高いと考えたが、FDG-PET撮影が術後の炎症沈静化後であること、リンパ節が自然退縮したことから転移よりも炎症の可能性が高いと判断した。

本症例では、術前の傍大動脈リンパ節腫大を炎症性のリンパ節腫大と判断したが、文献上リンパ節腫大の消退を認めた報告はなく、今後再増大する可能性も含め厳重な経過観察が必要であると思われた。

結 語

成人男性の精巣に発生した単一組織型成熟奇形腫の1例を経験した。今後再増大の可能性もあり厳重な経過観察が必要であると思われた。

文 献

- Mostofi FK: Proceedings: Testicular tumors; epidemiologic, and pathologic features. *Cancer* **32**: 1186-1201, 1973
- Carney JA, Kelalis PP and Lynn HB: Bilateral teratoma of testis in an infant. *J Pediatr Surg* **8**: 49-54, 1973
- Stevens MJ, Norman AR, Fischer C, et al.: Prognosis of testicular teratoma differentiated. *Br J Urol* **73**: 701-706, 1994
- Dehner LP: Male reproductive system. In Dehner LP, *Pediatric Surgical Pathology*. 2nd ed. pp 712-742, Williams and Wikind, Baltimore, 1987
- Heidenreich A, Moul JW, Mcleod DG, et al.: The role of retroperitoneal lymphadenectomy in mature teratoma of the testis. *J Urol* **157**: 160-163, 1997
- Simmonds PD, Lee AH, Theaker JM, et al.: Primary pure teratoma of the testis. *J Urol* **155**: 939-942, 1996
- Sella A, el Neggar A, Ro JY, et al.: Evidence of malignant features in histologically mature teratoma. *J Urol* **146**: 1025-1028, 1991
- Porcaro AB, Antonioli SZ, Martignoni G, et al.: Adult primary teratoma of the testis-report on five cases in clinical stage 1 disease. *Int Urol Nephrol* **33**: 657-659, 2001
- de Wit M, Brenner W, Hartmann M, et al.: [¹⁸F]-FDG-PET in clinical stage I/II non-seminomatous germ cell tumours: results of the German multicentre trial. *Ann Oncol* **19**: 1619-1623, 2008
- Oechsle K, Hartmann M, Brenner W, et al.: [¹⁸F] fluorodeoxyglucose positron emission tomography in nonseminomatous germ cell tumors after chemotherapy: the German multicenter positron emission tomography study group. *J Clin Oncol* **26**: 5930-5935, 2008
- Sanchez D, Zudaire JJ, Fernandez JM, et al.: ¹⁸F-fluoro-2-deoxyglucose positron emission tomography in the evaluation of nonseminomatous germ cell tumours at relapse. *BJU Int* **89**: 912-916, 2002
- 小林 弘, 雫石一也, 石ヶ坪良明: 炎症性疾患における¹⁸FDG-PETの有用性. *リウマチ科* **33**: 318-328, 2005

(Received on August 15, 2011)

(Accepted on August 7, 2012)