

両側精索に原発したと思われる左辜丸および 両側精索の悪性 androblastoma の1例

和歌山赤十字病院泌尿器科（部長：三国友吉）

三 国 友 吉
田 端 運 久

MALIGNANT ANDROBLASTOMA MANIFESTED PRIMARILY IN THE SPERMATIC CORDS BILATERALLY AND SECONDARILY IN THE LEFT TESTIS: REPORT OF A CASE AND REVIEW OF THE LITERATURE

Tomokichi MIKUNI and Kazuhisa TABATA

From the Department of Urology, Wakayama Red Cross Hospital

(Chief: Dr. T. Mikuni, M. D.)

1. A case of malignant androblastoma manifested primarily in the spermatic cords bilaterally and presumably secondarily in the left testis is presented. The patient, a 50-year-old man, was admitted to our hospital on June 23, 1975, complaining of painless firm masses in the scrotum on both sides of several months duration. There was no gynecomastia. Right inguinal orchidectomy was performed on July 3, left inguinal orchidectomy on July 23, and the exstirpation of the metastatic nodule from the skin of the left thigh on August 21, with postoperative chemotherapy with 5FU (250 mg×23). This patient died on September 15, due to enlarged metastases about 2 months after the first operation.
2. Authors could collect 70 cases of androblastoma from the literature up to the end of 1975 including authors' case, and a statistical survey was made on 70 cases of androblastomas with a discussion on its clinical features, pathohistology, histogenesis, nomenclature and differential pathohistology.
3. In the age distribution androblastoma showed two peaks, the highest one at the age of 0~1 year and the other at 30~34 years. The youngest is 5 hours old and the oldest 90 years old.
4. Gynecomastia has occurred in 15 of 70 (21.4%) as a whole, in 11 of 60 (18.3%) benign and in 4 of 10 (40%) malignant tumors.
5. Authors summarized 10 cases of malignant androblastoma up to date including authors' case and a discussion was made on its clinical features, pathohistology, therapy, prognosis, metastasis and predisposing factors.
6. In the literature up to date, authors could not find a report of primary androblastoma in the spermatic cord, namely in an extratesticular site. Most probably, the tumor of authors' case originated from aberrant cell elements of the primitive gonadal blastema located in the spermatic cord.

緒 言

辜丸の androblastoma（セルトリ細胞腫）はまれであり、われわれの調査では、Teilum (1958)¹⁾ によ

ると、Teilum (1946)²⁾ の第1例以後1975年末現在までに、海外ではおよそ65例が数えられる。しかしてこれらのうちの大多数は良性のセルトリ細胞腫であり、悪性例としては Mostofi ら (1959)³⁾ の第1例により、

Morin ら (1975)⁴⁾ の1例までの9例に過ぎず、きわめてまれとされている。また本邦においては、伊藤ら (1954)⁵⁾ の第1例より、志田ら (1959)⁶⁾、福島ら (1968)⁷⁾ および竹中ら (1975)⁸⁾ の各1例の4例をみるのみで、しかもいずれも良性のものである。最近われわれは、両側精索に原発したと思われる、転移を伴った、左睾丸および両側精索の androblastoma の1例を経験したので、ここにこれを報告し、あわせて2, 3の文献的考察を加えたいと思う。

症 例

患者：S.H. 50歳，工員

初診：1975年6月23日

主訴：両側の陰嚢内腫瘍

家族歴：不明

既往歴：7年前に左脛骨骨折にて医療を受けているほかには、著患を知らない。

現病歴：数カ月来両側の陰嚢内に無痛性の硬結のあることに気づいていたが、本年の6月始め頃から右側の腫瘍が急速に増大してきたので来院した。

現症：体格中等度，栄養はやや衰え，顔面蒼白で，元気がない。頸部，胸部には著変なく，女性化乳房は認められない。腹部では左腎部に抵抗をふれる以外には著変がない。外陰部の陰毛の生え方は男性型を示す。陰茎はやや小で，中等度の包茎を呈する。前立腺には著変がなく，右の睾丸は大きさ，硬度ともに正常，副睾丸もほぼ正常と思われるが，これに続く精索は全体として鵝卵大に腫大し，表面はほぼ平滑であるが，弾性硬で圧痛はない。右鼠径管に近い精索の上部は全く正常に触れ，この部の精管も正常大に識別しうる。左の陰嚢内には鵝卵大の表面平滑でやや硬いが，睾丸と思われる腫瘍と，これに接する精索の下部には，鵝卵大の硬い腫瘍をふれるが，それより上部の精索および精管には，今のところ異常は認められない。副睾丸の頭部はやや硬く触れるが，その体部および尾部には異常がないように思われる。両側の鼠径リンパ節，頸部，腋窩などの表にリンパ節の腫大は認められない。

検査所見：尿は黄色清澄で蛋白(－)，尿沈渣にも異常はない。免疫学的妊娠反応(－)，赤血球数357万，血色素量70.3%，11.2 g/dl，白血球数4,400，血小板数24.6万，白血球像は好中球65% (St 14, II核39, III核12)，好酸球1%，単球4%，好塩基球1%，リンパ球29% (大1，中28)，Ht 35.5%で貧血に傾く， α -FP (Ri 法)は68 μ g/mlで(－)，NPN 25，BUN 14，クレアチニン0.89，無機P 3.7各 mg/dl，Na 137，K

4.0，Cl 96，Ca 4.25各 mEq/l。尿酸1.1，総コレステロール104，トリグリセライド42各 mg/dl。VDRL(－)，W-R(－)，TPHA(－)黄疽指数4，GOT 15，GPT 11，アルカリフォスファターゼ4.5，LAP 97，LDH 403，TTT 1，総酸フォスファターゼ0.58，前立腺酸フォスファターゼ0.12 (BLU)，CRP 0，空腹時血糖値78 mg/dl，血沈平均値31，血清総蛋白量6.9 g/dl，A/G 0.84，血清蛋白分画はアルブミン45.6，グロブリン α_1 2.3， α_2 5.6， β 37.7， γ 8.9各%でアルブミンの減少と β グロブリンの著明な上昇がみられ，本腫瘍によるsecondary benign monoclonal gammopathyの疑いがもたれる，PSP試験は15分15%，30分計25%，60分計35%，120分計45%。IVPでは右腎盂，右尿管および膀胱像は正常であるが，左は30分後にも造影されず，レノグラムも右は正常型，左は無機能型を呈する。尿路結石像は(－)，胸部レ線像にも著変がない。左無機能腎については，その後RPやリンパ管造影などを実施する機会を得なかったが，おそらくは，左後腹膜腔リンパ節への転移巣による，左尿管下部の閉塞に基因するもののように推測される。以上で両側精索腫瘍および左睾丸腫瘍(疑)の診断のもとに7月3日まず右高位除睾丸術を施行す。摘除標本は9.5×5.0×4.5 cm，170 g。腫瘍は表面は平滑で，きわめて硬靱，その剖面では，小葉状に区切られた浅い凹凸がみられ，黄灰白色，弾性硬の腫瘍組織によって精索は全く置換せられ，精管の遺残も全く認められない。腫瘍の上極に接して不規則な形の母指頭大の精索水瘤がみられ，その内部には黄色透明の液をいれている。睾丸固有膜鞘腔内にも約15 mlの同様の水瘤液をみる。睾丸および副睾丸は肉眼的にも触診的にも全く正常と思われる (Fig. 1)。

病理組織所見：腫瘍の周辺部には鞘膜の結合組織がみられ，その脂肪組織内への腫瘍細胞の浸潤性の増殖が認められる。この腫瘍は僅少の間質基質成分を有する，比較的小型の上皮様細胞の索状ないし胞巣状の充実性増殖を主体とする腫瘍であり，管腔形成の傾向はほとんど全く認められない。各腫瘍細胞の原形質の境界は不明瞭で，円形，卵円形ないし紡錘形の核を有し，核分裂像もかなりみられる。なお，腫瘍組織のどの部分にも，リンパ球浸潤は全く認められない (Figs. 2, 3)。鍍銀標本では，染色操作の下手際のためか，腫瘍細胞の脱落が多くみられるが，各細胞索を取り囲んで，銀に好染する膠原線維と，繊細なレチクリン細線維 (reticulin fibrils) がみられ，この細線維はさらに各腫瘍細胞間にはいりこんでいるのがみられるが，両者の間には細網細胞におけるような密接な関係は認

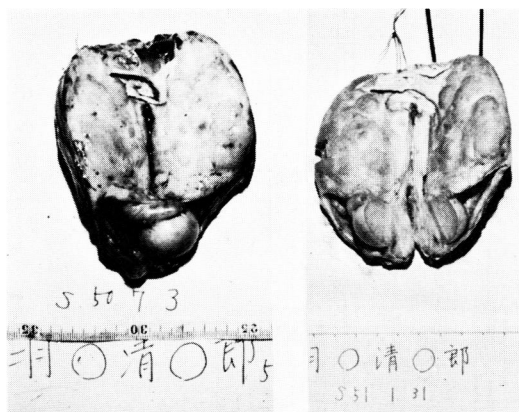


Fig. 1. Hemisection of the tumor of spermatic cord and normal testis (right side).

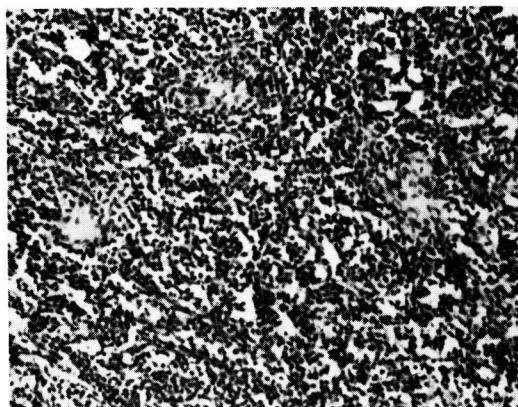


Fig. 2. The tumor of spermatic cord (right side). The tumor was mainly composed of solid cords or sheets of cells arranged in a diffuse and disorderly pattern (H.E. $\times 50$).

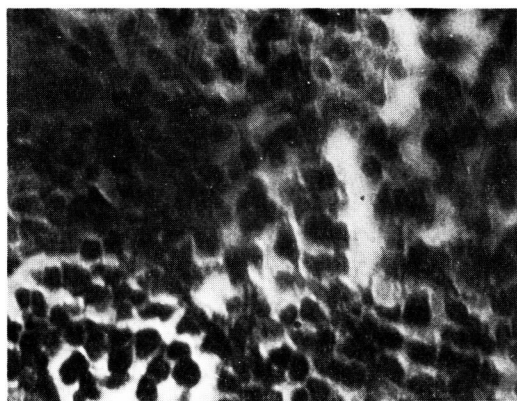


Fig. 3. Higher power from the same slide as in Fig. 2. Solid cords or sheets of cells with indistinguishable cytoplasmic borders, showing the granulosa-like appearance of the cells. No true tubule formation is seen (H.E. $\times 280$).

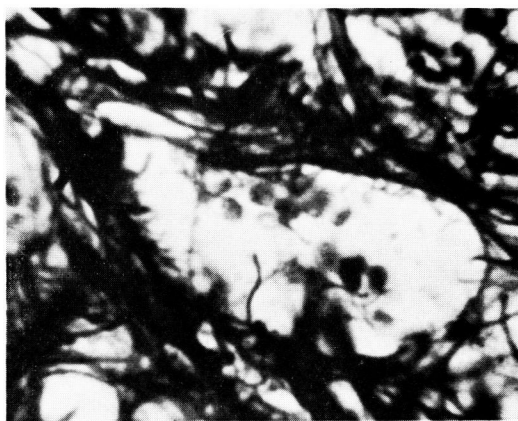


Fig. 4. Same tumor as Figs. 1-3. Note the reticulum surrounding the individual cell-cords or-sheets and each tumor cell surrounded by reticulin fibrils (Silver impregnation of reticulum. $\times 400$).

められない (Fig. 4). なお右睾丸の組織検査では、精細管はやや萎縮性で、一部に精子形成能の減退を認めるが、大部分は正常の組織所見を呈し、瘢痕や微細腫瘤などは認められない。組織学的診断は、顆粒膜細胞腫様の組織パターンを呈する、悪性の androblastoma である。

経過：術後より 5FU 250 mg を連日注射したが、食欲低下をきたしたので、14回の注射でいちおう中止す。このころ左陰嚢内腫瘤は急速に増大して超鷲卵大となったので、7月23日左高位睾丸摘除術を施行す。左精管は鼠径管のほぼ中央部まで、えんどう大に硬く肥厚しているの、精索は内鼠径輪部の健常部で結紮焼断した。

摘除標本：12×7×6 cm, 190 g. 剖面では、睾丸固

有鞘膜腔にはやや混濁した黄色の水瘤液約 50 ml が認められ、睾丸は正常よりもやや硬いようではあるが、表面は平滑で、外見上は正常のように思われたが、その剖面では正常の睾丸組織はほとんど認められず、灰白色の比較的柔軟な腫瘍組織に化しており、ところどころに散在性に大小の出血巣がみられる。副睾丸の頭部は大豆大に硬く腫大し淡紅色を呈する。体部と尾部は正常と思われるが、その尾部は漸次精索の腫瘍組織内に移行埋没している。精索は灰白色または淡紅色の硬靱な腫瘍組織に全く置換せられ、その中心部には同じように淡紅色の、硬く肥厚して全く腫瘍化した精管がみられる (Fig. 5 ↑印は精管)。

病理組織所見：淡紅色硬靱な精索腫瘍部と、灰白色柔軟の睾丸腫瘍部との2カ所より組織切片を作製し検

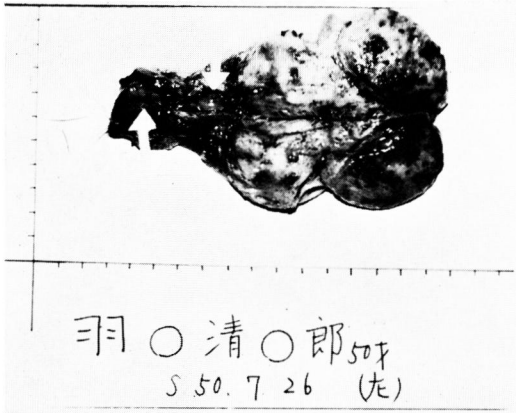


Fig. 5. Hemisection of the tumor of spermatic cord, testis and infiltrated vas deferens (arrow) (left side).

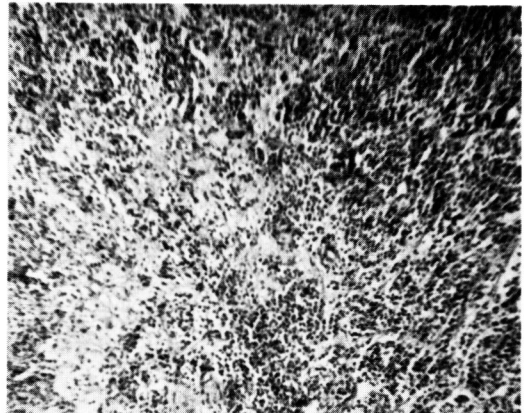


Fig. 6. The tumor of spermatic cord (left side). Solid cords and sheets of tumor cells (V.G. $\times 50$).

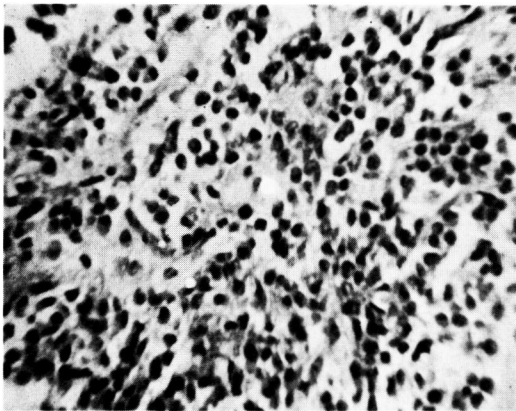


Fig. 7. Higher power from the same slide as in Fig. 6. Sheets and cords of epithelium-like cells (V.G. $\times 200$).

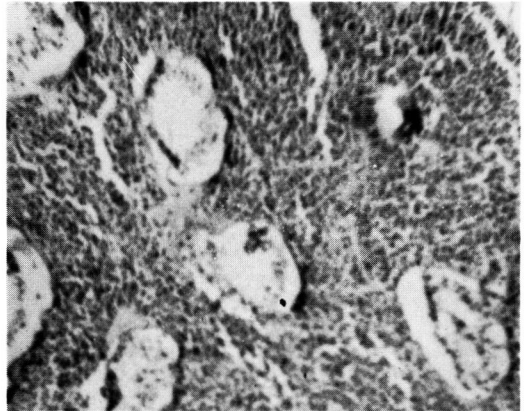


Fig. 8. The tumor of testis several atrophic seminiferous tubules scattered by sheets of tumor cells (V.G. $\times 50$) (left side).

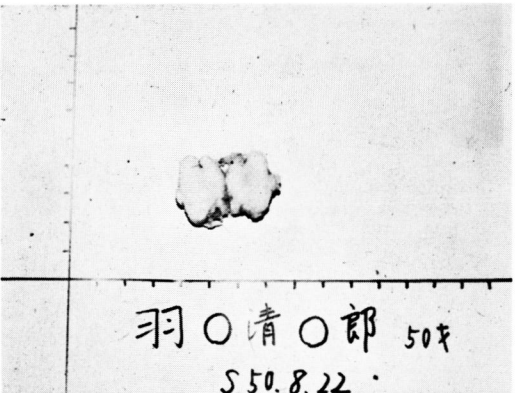


Fig. 9. The metastatic tumor in the skin of the left thigh.

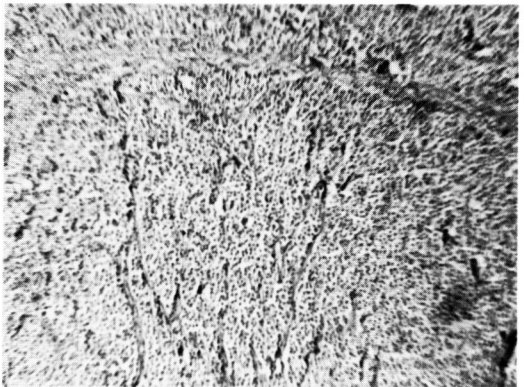


Fig. 10. The metastatic tumor as in Fig. 9. Most of the tumor was composed of solid cords and sheets of epithelium-like cells. Bands of fibrous tissue are relatively abundant in this area (V.G. $\times 50$).

査したが、両者ともに腫瘍細胞は比較的小型で、紡錘形ないし円形の核を有し、大小不同のやや著しい上皮様細胞の充実性の索状ないし胞巣状の増殖が主体をなし、核分裂像も多いが、間質に乏しい。すなわち右精索腫瘍と全く同一の組織所見である (Figs. 6, 7)。しかし、灰白色、軟の左睾丸腫瘍の組織では注目すべき所見がみられる。すなわち上述のような腫瘍細胞の密な浸潤に取り囲まれて、ところどころにやや萎縮に陥った精細管が、腫瘍細胞の海に浮ぶ島のように少なからずみられ、ことに睾丸固有鞘膜に直接する腫瘍部分では、ほぼ正常に近い精細管の集団的遺残が認められることである (Fig. 8)。このことは摘除標本において睾丸は外見上ほぼ正常とも思われ、その硬度も正常よりもやや硬い程度に触れた事実を説明するものであり、左睾丸がこの腫瘍の侵襲を受けてから、まだ日の浅いことを思わしめ、この睾丸腫瘍は、恐らくは、左精索腫瘍よりの二次的侵襲によるもののように推測されるのである。

第2回手術後の経過：術後左陰嚢内に著明な血腫を形成したので、7月26日左陰嚢下部に切開を加えて血塊を除去す。この頃から左大腿上部の浮腫性腫大が著明となり、また左大腿の下部1/3の屈側部の皮膚には、雀卵大のほぼ楕円形の扁平な無痛性硬結を触れるようになる。7月31日より5FU注射を再開す。8月5日には赤血球数255万、血色素51.3%, 8.2 g/dl, 白血球数3,400と貧血が著明となったので、この日輸血200 ml 施行。8月8日5FU注射は累計23回で中止す。8月13日左腹部の腫瘍は増大し、肝は半横指ふれ、腹水も認められる。8月19日左大腿部の皮下腫瘍は増大して鳩卵大となる。また左の脛骨の前面には雀卵大の凹凸不平の硬い腫瘍2コを触れるが、圧痛はない。またレ線検査では左大腿骨の顆上部に腫瘍状影像がみられる。8月21日左大腿皮下腫瘍の摘除と、第2回目の左陰嚢内血腫(約120 g)の除去をおこなう。皮下腫瘍は3×2×0.5 cm, 3 g, 扁平楕円形で、硬靱であり、その断面は灰白色でほぼ平滑である (Fig. 9)。

皮膚転移腫瘍の組織学的所見：両側の精索および左睾丸腫瘍の組織所見と全く同一の所見を示す。すなわち、顆粒膜細胞に似た楕円形ないし円形の核を有する小型細胞の、索状ないし胞巣状の充実性増生がみられ、間質基質成分はやや多い。核分裂像および異型核を有する細胞も多くみられる。しかし管腔形成はほとんど全くみられない (Fig. 10)。

その後の経過：9月1日の胸部レ線検査では、腫瘍の転移によると思われる心外膜炎に基づく胸水が証明された。9月4日CRP 3, LDH 273。また術前に

は(一)であった免疫学的妊娠反応は(+)となり、9月6日の尿中の17-KSは4.8 mg/dayで正常以下であるが、17-OHCSは4.2 mg/dayで正常、9月9日の血清のFSHは35.0, LHは36.5各MIU/mlで明らかに上昇を示している。この頃より左鼠径部、左大腿より下腿にかけての浮腫性腫脹が高度となり、腹水もまた著明となる。9月11日の骨盤骨のレ線像には著変はみられなかったが、その後は悪液質は漸次高度となり、9月15日すなわち第1回手術後2ヵ月余にて遂に死亡す。死後の剖検は家族の承諾を得られなかった。

考 察

Dixon & Moore (1953)⁹⁾によれば、睾丸腫瘍は精細胞性腫瘍(約96.5%)と非精細胞性腫瘍(約3.5%)に大別されるが、androblastoma (セルトリ細胞腫)はこの後者に属し、いわゆる gonadal stromal tumor の一つであるが、その頻度はかれらの調査によれば、米国のAFIPの990例の睾丸腫瘍のうち4例の約0.4%に過ぎず、きわめてまれとしている。Collins & Pugh (1964)¹⁰⁾は英国のTTPRの995例中6例の約0.6%としているが、最近 Mostofi (1973)¹¹⁾は米国のTTRの6,000例中に約3%を占めたとしている。緒言においてふれたごとく、この種の腫瘍はわれわれの調査によれば1975年末現在、海外ではおよそ65例、また本邦では著者の症例を含めて5例で総計およそ70例を数える。しかしこのうち悪性例は海外の9例、本邦では著者の1例のみで計10例で、悪性例の頻度は約14.2%である (Table 1)。以下本腫瘍について、2, 3の文献的考察を加える。

ここで Table 1 について若干の注釈を加えておく。Shiffman (1967)¹²⁾の症例表には、Fergusson (1962)¹³⁾および Pugh (1962)¹⁴⁾の9例を記載しているが、Talaman (1971)¹⁵⁾によると、この9症例については、Collins ら¹⁰⁾がこれを再検討して、このうちの4例の悪性例のうちの3例を、tumours of uncertain origin に編入してこれを除外し、1964年に6例と訂正のうえ再報告しているものであるので、重複例として、上記9例はこれを抹消した。また Mostofi ら¹¹⁾によると、かれの23例のseriesのうちには、Jones ら (1950)¹⁶⁾の2例、Mostofi (1952)¹⁷⁾の2例、Dixon ら⁹⁾の4例のうちの1例の計5例を含んでいると記述しているので、これらの5症例は()に入れて示し、これを症例数の計算から除外した。したがって総症例数は70例となる。なお睾丸のgranulosa cell tumorの症例としては、Teilum¹⁾はすでに、Cohen ら (1953)¹⁸⁾

Table 1. Androblastoma (セルトリ細胞腫) 症例

著 者	年次	例数	年齢	患側	診 断	Gyn
Teilum	1946 →49	1 2	53歳	左	And And×2	+ —
Östergaard (Jones ら)	1947	1	28歳	左	AdreT (SCT)	+
Lewis ら	1950	1	68歳	右	GrCT	+
Laskowski (Mostofi)	1952	1 (1) (1)	35歳	右	" (GST) (GST)	+ (+)
Dixon ら	1953	3+ (1)			And×3	—
伊藤ら	1954	1	11月	左	SCT	—
Scully	1955	1	53歳	右	GrCT	+
Culp ら	1956	1	36時	右	SCT	—
Fuglsang ら	1957	1	63歳	左	And	+
Trapeznikova	1957	1	8 歳	右	"	+
Fam ら	1958	1	3.5月	左	"	+
Ikenberry	1958	1	32歳		SCT	+
		1	7 月	左	GST	+
		1	6 月	左	"	
		1	3 日	右	"	
		1	11歳		"	+
		1	6 日		"	
小児例10		1	4 月	左	"	—
		1	2 歳	左	"	
		1	3 月	左	"	
		1	35時	右	"	
		1	17時	左	"	
		1	33歳	右	"	
Mostofi ら	1959	1	30歳	右	"	
		1	25歳	左	"	
		1	○41歳	左	"	+
		1	23歳	右	"	
成人例13		1	44歳	左	"	
		1	25歳	左	"	
		1	83歳	右	"	—
		1	67歳		"	—
		1	24歳	左	"	
		1	55歳	右	"	
		1	50歳		"	
		1	32歳	左	"	
Yenermen ら	1959	1			And	
志田ら	1959	1	30歳	右	SCT	—
Gonder ら	1960	1	7 月	左	GST	陰茎肥大(+)
Philip	1960	1	青年		"	
Lange ら	1960	1	11歳	両	And	
Bormel	1961	1	5 月	右	GST	
Batsakis	1961	1	3 日	右	"	

		1	10歳	右	SCT	+
Holtz ら	1963	1	5 月		"	
		1	1 月		"	
		1	5 時		"	
		1	6 歳		"	最径辜丸(+)
		1	○27歳		"	+
Collins ら	1964	1	30歳		"	
		1	33歳		"	
		1	35歳		"	
		1	20歳		"	
		1	○6 歳	左	And	—
Nagy ら	1964	1	68歳	右	"	—
		1	○62歳	左	"	—
Shiffman	1967	1	28歳	左	"	—
Perch ら	1967	1	24歳	右	GST	—
Abell ら	1968	1	90歳		SCT	—
Rosvoll ら	1968	1	○8 歳	左	"	(黒人)
福島ら	1968	1	30歳	左	"	—
Hopkins ら	1969	1	○63歳	右	"	+
		1	○79歳	左	"	—
Talerman	1971	1	○27歳	右	"	—
竹中ら	1975	1	41歳	左	"	—
Morin ら	1975	1	○60歳	右	And	+
著 者	1977	1	○50歳	左両精索	"	—

計70 ○印は悪性例 (10) を示す 計15

注：And：androblastoma, AdreT：adrenocortical tumor, SCT：Sertoli cell tumor, GrCT：granulosa cell tumor, GST：gonadal stromal tumor, Gyn：gynecomastia を示す。

および Melicow (1955)¹⁹⁾ の各1例の、少なくとも2例があることに言及しており、福島ら⁷⁾も Cohen の症例について記載しているが、欧米においては Mostofi ら²⁰⁾や Shiffman¹²⁾ 以降の諸文献には、この2例は省かれているので、その理由は不明であるが、かれらに従って、本表でもこの2例を割愛している。

発生年齢：70例のうち、年齢不明の6例を除き、64例について調査した (Table 1, 2; Fig. 11)。このうち Table 1 の Philip (1960)²⁰⁾ の young adult と記載された男の年齢を20～24歳の群に算入した。最年少は Holtz ら (1963)²¹⁾ の生後5時、最年長は Abell ら (1968)²²⁾ の90歳である。最も特徴的な点は、1歳以下の乳幼児が17例 (26.5%) と圧倒的に多くて最高のピークをなし、0～14歳 (24例, 37.5%) の乳幼小児期に第1峯を形成し、次に30～34歳に8例 (12.5%) の第2のピークをなし、20～44歳 (24例, 39.06%) の青壮年期に第2峯を形成している。さらに50～69歳の高

Table 2. 年 齢 分 布

	月	年																			
年 齡	0 12	1 4	5 9	10 14	15 19	20 24	25 29	30 34	35 39	40 44	45 49	50 54	55 59	60 64	65 69	70 74	75 79	80 84	85 89	90 94	
例数	17	1	3	3	0	5	6	8	3	3	0	4	1	4	3	0	1	1	0	1	
%	26.5	37.5			39.06						18.75										

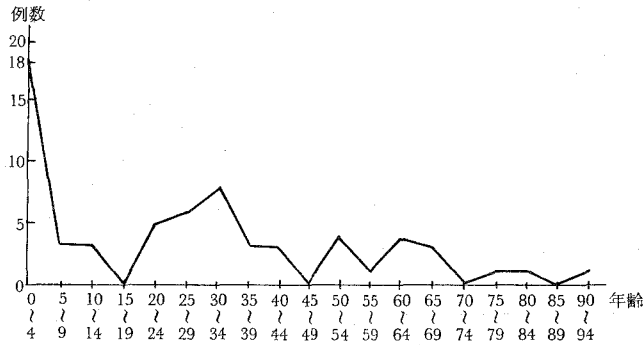


Fig. 11. 年 齢 分 布

年齢層にも12例 (18.75%) がみられ、第3峯形成の気配があるようにも感じられる。なお14歳または12歳以下を小児とすると、乳幼児は24例を占め、高橋ら (1973)²³⁾ の胎児性癌31例中における、乳幼小児期の8例をかなり上回っている。androblastoma が乳幼児期に多いことについては、すでに Mostofi ら³⁾、Holtz ら²¹⁾、Hauser ら (1965)²⁴⁾、竹中ら⁸⁾の言及しているところであるが、本腫瘍の年齢分布が乳幼小児期と青壮年期との二峯性分布を示すことは、われわれの調査によって、ほぼ確実となったと思われるが、この事実は高橋ら²³⁾が胎児性癌において見いだした二峯性年齢分布にほぼ一致している。高橋らはこの事実を、胎児期起源のものと、生後に起源を有するものとの区別とするのが考えやすいとし、また思春期と同時に急増する発生要因としては、性腺刺激ホルモンを含めた内分泌環境の影響を想定することも可能ではないかと思われるとしている。竹中らは、本腫瘍の発生には発生学的異常とともに、睪丸の内分泌機能となんらかの関連性が存在していると思われるとしている。しかし高橋らの胎児性癌の年齢分布の最大ピークは25~29歳 (12例) にあるが、本腫瘍のその最大のピークは1歳未満 (17例) にあり、この点において胎児性癌のそれとは逆になっている。このことは本腫瘍の発生要因としては、内分泌環境の影響の因子よりも、胎生期起源の因子のほうが、より大きな比重をもつことを示唆

しているように憶測せられる。

患側：不明の23例を除く47例において、左26 (55.3%)、右20 (42.5%)、両側1 (2.1%) と左にやや多い。Dixon ら³⁰⁾の AFIP の990例の一般睪丸腫瘍における患側の調査では、左は46%、右は54%であり、本腫瘍のそれとは逆の結果になっているが、Dixon らは左右における発生の頻度は、approximately equal なりとしている。しかし Whitmore, Jr.²⁵⁾ は一般睪丸腫瘍においては、やはり右にやや多いとし、これは潜伏睪丸が、左よりも右にやや多発しているという事情に関係があると記しているが、睪丸腫瘍の発生の左右差は、Dixon らの説のごとく、症例数の増加に従って、左右 equal に接近するに至るのではないかとも思われる。なおわれわれの症例では、腫瘍は異所性に両側の精索に原発し、これがさらに左睪丸に連続性に侵襲したものと推測されるが、睪丸に関しては、その発生側を左に算入した。なお本腫瘍の異所性発生については項を改めて記述する。

症状：陰嚢内の無痛性腫瘍 (少数例では鈍痛性) で大きさは種々である。その硬度は、hard, firm, または firm to hard などと表現されているように、硬靱であることが特徴とされる。その剖面は黄色、灰白色と記載されたものが大半である。われわれの症例では右の精索腫瘍は灰白色、左は淡紅色、左睪丸腫瘍は灰白色であった。剖面は分葉状の浅い凹凸を示すものが

多く、少数例では腫瘍組織の一部に大小の嚢腫の形成をみる。次にセルトリ細胞から分泌される女性ホルモンによるとされる、女性化乳房の発現が特徴的とされているが、われわれの調査ではその発現頻度は意外に低く、70例中15例(21.4%)を数えるにとどまる。本邦の5症例ではいずれも女性化乳房は(－)であった。ちなみに、イヌの睾丸のセルトリ細胞腫における、女性化乳房の合併の頻度は、Cotchin (1960)²⁶⁾によると約30%とされる。すなわちヒトのその約1.5倍の頻度である。さて女性化乳房は、この腫瘍がある程度以上に増大して、はじめて発現する症状であり、また腫瘍摘除後には漸次消退するとされている。しかるに Gonder ら (1960)²⁷⁾ の7カ月の乳児の1例においては、逆に男性化傾向を示し、性的早熟の徴として著明な陰茎肥大をきたしたが、腫瘍摘除後には漸次消退している (Table 1)。なお女性化乳房の発現頻度については、良性例では11/60 (18.3%)、悪性例では4/10 (40%) であり、悪性例における頻度は良性例のその2倍強の高率を示す (Table 1)。Hopkins ら (1969)²⁸⁾ も悪性例に多いことを指摘しているが、Talaman¹⁵⁾ は症例数が少ないので、結論を出すにはまだほど遠いとしている。

内分泌所見：女性化乳房を伴った症例においては、その尿中の女性ホルモン値の上昇を示した Morin ら⁴⁾、Scully (1955)²⁹⁾ および Østergaard (1947)³⁰⁾ らの症例があり、また Collins ら (1964)³¹⁾ および Lewis ら (1950)³²⁾ などの症例では尿中のゴナドトロピン値の上昇がみられたが、一方これらの値が正常値の範囲内にある症例も少なくない。例えば Mostofi ら³³⁾ の悪性例ではゴナドトロピン値が、また Hopkins ら²⁸⁾ の悪性例ではエストロゲン値がそれぞれ正常値を示した。なお術前にこれらの検査が施行されていない症例も少なからずある。前述の Gonder ら²⁷⁾ の7カ月の男児例では、術前の尿中の ketosteroid は 1.3~1.6 mg/24 hrs、また尿中 estriol は 1.4 µg/l で、明らかな上昇を示したが、術後1カ月でそれぞれ 0.46 および 0.3 と両者ともに正常値に戻り、陰茎の肥大も漸次縮小したという。Collins ら³¹⁾ は、一般的に、女性化乳房が、腫瘍のホルモン効果の直接作用であるのか、または腫瘍による睾丸機能の障害の結果であるのか、を決定することは困難であるとしている。

われわれの症例においては、術前の免疫学的妊娠反応は(－)であったが、両側除辜術施行後の約6週後の検査では、妊娠反応は(＋)となり、また尿中の 17KS は 4.8 mg/day で正常以下、17-OHCS は 4.2 mg/day で正常であったが、血清の FSH は 35.0, LH

は 36.5 (MIU/ml) で明らかな上昇を示した。本症例の特異な点は、腫瘍は精索に原発しており、右睾丸は肉眼的には全く正常で、組織学的にも著変がなく、さらに左睾丸にも精細管の一部遺残を認めえた点にあり、このために両側除辜術後において、はじめて妊娠反応が陽性となり、血清の FSH および LH の上昇をきたしたものと推測される。

組織学的所見：本腫瘍に対しては、Table 1 に示すごとく、1946年以来種々の名称のもとに症例の報告がおこなわれている。これらを分類整理すると、gonadal stromal tumor は 25 例 (35.7%)、Sertoli cell tumor は 23 例 (32.8%)、androblastoma は 18 例 (25.7%)、granulosa cell tumor は 3 例 (4.28%)、そして adrenocortical tumor は 1 例 (1.45%) である。ただし、Mostofi ら³³⁾ の 23 例中には、前述のごとく、Jones ら¹⁶⁾ の Sertoli cell tumor の 2 例と、Dixon ら⁹⁾ の androblastoma の 1 例を含んでおり、この分類においては、これらを、それぞれもとの名称の部類に算入し、したがって、Mostofi らの gonadal stromal tumor の 23 例を、3 例を減じて 20 例として計算している。

このように、種々の命名がおこなわれていることは、本腫瘍の組織像そのものの多形性を物語るものにほかならず、本腫瘍の組織学的診断の困難性を思わしめる。まず androblastoma なる名称は、Teilum の 1944 年来の、睾丸と卵巣との homologous tumors に関する一連の比較研究において、女性の男性化をきたす卵巣の arrhenoblastoma に対比して、男性の女性化をきたす睾丸腫瘍に対して、1946年に Teilum²⁾ の命名したものである。かれらはこの腫瘍は、未分化の gonadal blastema に由来し、gonad の発育分化の過程において、生殖細胞の支持組織としての gonadal stroma の、胎生学的分化の過程の諸相 (phases) を、反映再現するものと想定し、かれは Meyer (1930)³³⁾ に従い、その組織型に diffuse stromal, intermediate, and tubular の 3 types を区別している。Teilum¹⁾ は、さらに、その後に至り、これらの腫瘍を androblastoma と granulosa cell tumor の 2 groups に分類しており、前者は管腔構造を有する諸症例を含む group であり、後者は上皮細胞が索状や柱状の排列を示す group を指示している。しかしかれは、さらに、その論陣をすすめて、純粋に形態学的基礎のみに立脚して、睾丸の androblastoma と卵巣の androblastoma とは identical であり、また睾丸の granulosa cell tumor は卵巣の granulosa cell tumor とは identical であると断定し、さらに睾丸の androblastoma と睾丸の granulosa cell tumor とは homologous で

あり、また卵巣の androblastoma と卵巣の granulosa cell tumor とは同様に homologous であると説いている。Dixon ら²⁹⁾ は androblastoma は、その組織要素として、epithelial tubules か、または diffuse spindle-cell stroma より成り、あるいはまた両者の混合より成るとし、腫瘍における二つの組織要素の占める比率の大小により、その組織型を 1) 上皮管性 (tubular), 2) びまん基質性 (diffuse stromal), 3) 両者の混合型 (mixed) の 3 型に分類している。このうち 2) 型が最も未分化型であり、次いで 3) 型, 1) 型が分化型 (セルトリ細胞腫) に当る。次に Mostofi ら³⁰⁾ は 23 例の gonadal stromal tumors を呈示し、series の腫瘍は上皮性細胞と、線維芽細胞に似た紡錘形細胞とにより構成されているが、23 例中の 5 例はほとんど全く上皮性細胞だけの構成成分より成り、残りの 18 例には上皮性細胞成分と線維性細胞成分の両者が種々の比率で含まれていたが、全く線維芽細胞様成分だけで構成されている腫瘍はみられなかったとしている。上皮性細胞は六角形から、高い柱状のものまで、その形は変化に富む。核は大きく円形または卵円形で、繊細なクロマチン網を囲む明確な核膜を有し、小さい 1 コの好塩基性の核小体をみる。細胞質は豊富で、大きな空胞をもち、しばしば脂肪を含む。しかし時には細胞質は乏しく、好酸性かまたは好塩基性である。核分裂像や巨細胞はきわめてまれである。上皮細胞の排列には多様性があり、多くの症例では、細胞は管状に排列し精細管に似る。腫瘍の他の部位では、細胞はより小型で、さいころ状で、これらが充実性の索状や胞巣状に排列しており、その組織像は卵巣の顆粒膜細胞腫を思わせる。5 症例においては顆粒膜細胞様の数層の細胞に囲まれた、グラーフ氏濾胞を思わせるような濾胞形成をみたが、その内部には卵細胞はみられなかった。またある症例では Call-Exner bodies 類似の構造がみられた。時には上皮細胞は豊富な硝子質様の、エオジン好性の細胞質を有し、Leydig 細胞や黄体化細胞に似ているが、しかしそれらはすべて管腔内に存在していたという。第二の構成要素は、細長い核をもつ紡錘形細胞である。この細胞の細胞質はエオジン好性で、ときには細胞質内に空胞形成がみられる。この紡錘形細胞は普通の線維芽細胞よりも肥えている。純粋の紡錘形細胞性の卵胞膜様腫瘍 (pure spindle cell theca-like tumors) はまれであるが、しかしほとんど半数の腫瘍には、明確な、しばしば相交錯する紡錘形細胞領域をみることができる。上皮性細胞と、この紡錘形細胞との間には、時折りこの両者の移行の状態が認められた。硝子質化の領域はし

ばしばみられ、また少数の二、三の腫瘍には石灰化巣がみられている。

われわれの症例の組織像は、既述のごとく、僅少の間質基質成分を有する、管腔形成の全くみられない、さいころ状の上皮細胞の、索状ないし胞巣状の充実性増殖が主体をなし、一見、顆粒膜細胞腫を思わせる組織パターンを呈しており、Teilum¹⁾ のいわゆる “granulosa cell tumor” 型の androblastoma と思われる。

ここで Mostofi ら³⁰⁾ のこの group の腫瘍の組織発生論ないし命名論に簡単にふれる。かれらによると、この group に属する腫瘍は人により種々の名称で呼ばれており、Jones ら¹⁶⁾ は Sertoli cell tumor, Laskowski (1952)³⁴⁾ や Scully²⁹⁾ は granulosa cell tumor, Östergaard³⁰⁾ は adrenocortical tumor, また Teilum¹⁾ は androblastoma および granulosa cell tumor と名づけているが、Mostofi らは、これらの名称は、種々の理由から、すべて不適当であるとしており、この腫瘍のおもな組織型の如何にかかわらず、これを Mostofi¹⁷⁾ に従い “specialized gonadal stromal tumor” と呼びたいと述べ、この名称にはこの腫瘍の起源細胞を表示している利点があるとしている。かれらはまず、Sertoli cell tumor なる名称は、この種の腫瘍の多数のものには、Sertoli cell に特有の高い柱状の上皮に囲まれた管状構造を含まないことがあり、たとえ定型的な Sertoli 細胞と紡錘形の線維芽細胞様の要素との間に、両者の移行の線を完全に追跡しようとしても、人を誤らせるとしている。また granulosa cell tumor なる名称は、婦人科学の分野ですでによく知られた内包をもつ腫瘍の名称であり、この名称はこの明確に認識され、分化した腫瘍のために留保するべきものと思うと述べている。Mostofi らはさらに説いて、これらの腫瘍は、睾丸の精子形成細胞を支持するための網状構造を形成する specialized stromal cell から由来するものと信ぜられ、その組織構造の多彩な変異像の中で、男性または女性の gonad の、ほとんどどのような支持構造をも再現しうるであろうとしている。すなわちセルトリ細胞管、間質細胞、顆粒膜細胞、卵胞膜細胞などが、すべて身代りとして、腫瘍組織内にみられるとしている。けだし落合 (1960)³⁵⁾ によれば、未分化性腺たる gonad は、genetic sex のいかんにかかわらず、睾丸あるいは卵巣に分化しうる両方の原基 (anlage) を共存させており、少なくとも胎生 5 週以前の胎児は、性腺に関しては、潜在性半陰陽の状態にあり、胎生 5~6 週以後において gonad は、正常の場合には、genetic sex に従って男あるいは女の 1 方向の

Table 3. 悪性 androblastoma 症例 (肉眼的, 組織的所見を除く)

No.	著者 (年次)	年齢	患側 (期間)	症 状	治 療	経過一転帰	転 移	内 分 泌 所 見
1	Mostofi ら (1959)	41歳	左 (6ヵ月来)	無痛性腫瘍, 5ヵ月来月下肢痛, 6ヵ月来 gyneco. (+)	除睾術	術後5ヵ月転移の拡大で死亡	頸部リンパ節など広範な転移(+)なるも部位不明	妊娠反応術前(-)
2	Collins ら (1964)	27歳	不明	無痛性腫瘍, 5ヵ月来有痛性の gyneco. (+)	除睾術	術後3ヵ月死亡	(+)なるも部位不明	尿中のゴナドトロピン著増す
3	Nagy ら (1964)	35歳	左 (3週来)	無痛性腫瘍, 左副睾丸, 左精索にも腫瘍(+) gyneco. (-)	除睾術	術後1年死亡	触知されるも部位不明	ホルモン異常(-)
4		62歳	左 (2ヵ月来)	鈍痛性腫瘍, 4週前から疼痛強くなる. 2ヵ月で8kgやせる. gyneco. (-)	除睾術	術後3ヵ月で鼠径および後腹膜リンパ節腫大(+) 術後10ヵ月死亡	鼠径リンパ節, 後腹膜リンパ節	ホルモン異常(-). 誘因として1年前に左睾丸打撲(+)
5	Rosvoll ら (1968)	8歳 黒人	左 (3年来)	無痛性腫瘍, 最近の2週間で急に増大. IVPで左尿管の左方偏位(+)	1) 除睾術 2) 両側後腹膜リンパ節郭清術 3) 術後 Co ₆₀ 照射 4) Vincristine	1) に引き続き2), 3), 4) 施行, 術後1年6ヵ月健在	肺(-), 骨(-), 肝(-) 後腹膜リンパ節腫大(++) で, 最大のものは9×3.5×3 cm	術前の妊娠反応(-) エストロジエン測定せず
6	Hopkins ら (1969)	63歳	右 (不明)	1日前の外傷後に有痛性となり, 腫瘍に気づく. gyneco. (+), 除睾後消失す	1) 除睾術 2) 後腹膜リンパ節に対し, 予防的放射線照射 3) 胸骨に局所的放射線照射	1), 2) の3年後に胸骨に転移し, 3) を施行す. 4年後には骨盤骨, 肋骨, 脊椎, 肋骨, 硬膜に転移し, 1) 後4年8ヵ月死亡	剖検により, 1) 右副腎に1mm 径の転移(+), 2) リンパ節系統には転移(-), 3) 頭蓋骨以下の全骨系統に転移(++)	術前の 17-KS とエストロジエン値は正常
7	Tallerman (1971)	79歳	左 (6ヵ月来)	腫瘍は後に有痛性となる 精索は正常, gyneco. (-)	1) 除睾術 2) 右鼠径リンパ節摘除 1) 後肺炎のため放射線照射施行せず	1) 後1.5ヵ月で右の鼠径リンパ節転移(++)となり2) 施行す, 1) 後3ヵ月余死亡	鼠径リンパ節, 傍大動脈リンパ節, 骨(-), 肺(-), 肝(-)	術前検査せず, 術後は正常値, リンパ節転移後も正常値を示す
8		27歳	右 (8年来)	19歳時に無痛性腫瘍に気づく. 漸次増大して8年後にはグレープフルーツ大となり, 圧痛軽度(+) 精索正常, 左辜萎縮(+) gyneco. (-)	1) 除睾術 2) 放射線 (3000R), 右腹部リンパ節および右鼠径リンパ節に対して照射す	1) 後リンパ管造影で後腹膜リンパ節転移を知り, 2) を施行す, 術後8ヵ月再発(-)	後腹膜リンパ節, 鼠径リンパ節, 肝シンチでは肝(-), その他(-)	術前検査せず, 術後の尿中ゴナドトロピン, エストロジエンは正常値内
					1) 除睾術 2) 後腹膜リンパ節郭清	1) 後妊娠反応(+)となり, 3) を施行して(-)となる. 1) 後8ヵ月で皮膚		

9	Morin ら (1975)	60歳	右 (数年来)	鈍痛性腫瘍, 数年来 gy- neco. (+), 陰毛 薄し, 声は低い, 副辜丸 精索にも侵襲(+)	3) 化学療法 {actinomycin D 6 mg cytostatin 3 g vincristine 4 mg 3者併用 4) 皮膚転移果摘除 5) 化学療法(3)と同じ 6) 右胸膜腔にthio-tepa 注入 7) Atabrine 200 mg×3	転移(+)となり, 4)を施行, さらに8ヵ月後皮膚 転移再発し, 右肺にも転 移(+)となり, 5)を施行 するも右肺葉は増大し, 右 胸膜腔に浸出液(+)となり 10ヵ月後には右胸腔に chest tubeを留置し, 7) を施行し tubeを抜去, 肺 さらに6ヵ月後には右肺 転移果は増大し, 1)後3 年3ヵ月死亡	皮膚, 右肺, 右胸膜, 剖 検で左肺にも転移(+). 癌(-), 後腹膜腔リンパ 節(-), 後腹膜腔リンパ 節の mumps orchitis に 関する副辜丸萎縮(+)で 不妊である.	妊娠反応は術前(-), 術 後(+)となり, 尿中エス トロゲンなどは正常一 値で, 尿中エストロ ールのみに上昇をみる.
10	三國 ら (1977)	50歳	1) 右精索 (数ヵ月来) 2) 左精索 (数ヵ月来) 3) 左辜丸 (2~3週来?)	無痛性腫瘍, gyneco. (-), 左腎は初診時に無 機能腎の状態にあり	1) 右除腫術 (7月3日) 2) 5FU 注射×23 3) 左除腫術 (7月23日) 4) 皮膚転移果摘除 (8月21日)	1)~3)施行後, 左大腿屈 側に皮膚転移(+), 8月 13日腹水(+), 左腰骨に 転移(+), またX線検査 で左大腿骨に転移(+), 8月21日4)を施行, 9月 1日心外膜転移による胸 水(+), 9月15日1)後2 ヵ月余で死亡	後腹膜腔リンパ節, 皮膚 左大腿骨, 左腰骨, 心外 膜, 腹膜	妊娠反応は術前(-), 術 後(+)となり, 尿中17- OHCs は正常, 血清の FSH, LH は上昇を示し た, エストロゲン値測 定せず

みに分化発育するのである。しかし病的場合には、Mostofi らによれば、ことに新生物的増生においては、男か女かの1方向のみの、分化のための厳しい制御が乱れて、正常の辜丸または卵巢の名残りの支持組織の構造が、ともに分化発現することが期待されうるとしている。辜丸のセルトリ細胞と同一起源の卵巢の細胞は顆粒膜細胞であるが、その一部は排卵後には黄体細胞に変形する。このゆえに腫瘍の構成組織成分として、卵巢の顆粒膜細胞に似た組織成分や、卵胞膜細胞と同族の紡錘形細胞、または黄体細胞と相似の細胞などがみられるとしても不思議ではないと記している。Holtz ら²⁴⁾や Perch ら (1967)³⁶⁾ は Mostofi らの説を支持しており、Teilum¹⁾ の純粹に形態学的基礎のみに立つての組織発生論に対して反論を加えている。しかし一方 Collins ら³¹⁾は、これらの腫瘍は、セルトリ細胞の多彩な分化の程度を再現するものであり、これを Sertoli cell tumor と呼ぶべきであろうと述べ、さらに Mostofi らの specialized stromal tumors についての一般的な組織発生論は、purely speculative であり、あるいは too all-embracing to be meaningful であると評し、さらに間質細胞腫が stromal origin の group に位置づけられていることに疑問を表明している。Perch ら³⁶⁾は、これらの腫瘍の組織発生についての論議は、確立されたというには、なお程遠いものであるとはいえ、Mostofi の “tumors of specialized gonadal stroma” なる名称は、現時点では、他の命名に比して混乱の少ないものと思われると述べている。Rosvoll ら (1968)³⁷⁾ はヒトの gonad の支持組織から発生する腫瘍には、fibroblasts, Leydig cells, granulosa cells および Sertoli cells などによく似た細胞がみられるが、時にはこれらの細胞の mixed pattern を示し、また時にはただ一種類の細胞増殖 (only one cell population) のみを含みうると述べている。Collins ら³¹⁾はこれらの Sertoli cell tumour, Teilum の androblastoma, および Mostofi らの tumors of specialized gonadal stroma など、その名称は異なるが、その本質は一つであり、同一の腫瘍群を意味していると述べている。

次に腫瘍の組織所見と女性化効果との関係について簡単にふれる。Teilum¹⁾ は管腔型を主とする腫瘍においては女性化効果が強く示されるが、これらのセルトリ細胞の細胞質内には多量の lipid を含んでいると記している。Gonder ら²⁷⁾は、macrogonitosomia praecox をきたした7ヵ月男児の上皮管性の gonadal stromal tumor の組織所見として、基質細胞の一部に Leydig 細胞に似た細胞集団がみられたとしている。

Culp ら (1956)³⁸⁾ は、生後 36 時の乳児の右睪丸の mixed type のセルトリ細胞腫を経験したが、この腫瘍の管腔要素はセルトリ細胞の前駆者として estrogen を産生するが、基質性細胞は Leydig 細胞に関係があって、androgen を産生する。このゆえに組織要素のいずれが組織成分の主体をなすかによって、生ずる臨床的応答が左右されることになるとしている。

組織学的鑑別診断：管状構造の明らかでない索状や胞巣状の充実性増殖を示す型の androblastoma では seminoma との混同が起こりうる。われわれの症例も、はじめは seminoma と診断された。Nagy ら (1964)³⁹⁾ はかかる場合には組織の鍍銀染色標本の検査によって、容易に鑑別するという。すなわち androblastoma では腫瘍細胞を取り囲む嗜銀性細線維がみられるが、seminoma ではこれがみられないことを記している。また本腫瘍では組織の硝子質化がみられることが特徴的とされているが、seminoma にはこれもみられないとしている。われわれの症例でも、この嗜銀性の細線維が明らかに観察された。Collins ら³¹⁾ や Talerman¹⁵⁾

は、かれらの経験例が seminoma と誤診されたことから、両者の鑑別点として、seminoma においては、きわめて普通にリンパ球の浸潤がみられることを挙げており、本腫瘍には、これに反して、リンパ球の浸潤はみられたことがないと記している。われわれの症例においても同様であった。次に teratoma との鑑別については、Collins ら³¹⁾ は MTI (malignant teratoma intermediate) においてはセルトリ細胞腫の管腔構造に似た構造がしばしばみられるが、他方セルトリ細胞腫にも、容易に teratoma の印象を与えるような組織像を示す部分がありうるのであるが、両者の鑑別には、多数の section の組織検査によって、普通に解決されるとしている。かれらの 6 症例のうちの第 2 例 (Table 1) では MTI の像を示す部分がみられたが、他の部分には、より高度に分化した管状構造がみられ、セルトリ細胞腫のカテゴリーにはいるものと診断された。Morin ら⁴⁾ の症例も、はじめは teratocarcinoma と誤診されたが、最終的には androblastoma と診断されたと記している。

治療：治療については、良性例においては除睪術の

Table 4. 治療と経過・転帰

No.	著 者 (年 次)	発症後	術 後	転 帰	術 前 の 転 移	治 療 の 内 容				放 射 線	抗 癌 剤
						手 術		後腹膜 リンパ 節郭清	転移巣摘除		
						除睪術					
1	Mostofi ら (1959)	6 カ月来	5 カ月	死	+	+	—	—	—	—	—
2	Collins ら (1964)	不 明	3 カ月	死	不明	+	—	—	—	—	—
3	Nagy ら (1964)	3 週来	1 年	死	不明	+	—	—	—	—	—
4		2 カ月来	10 カ月	死	不明	+	—	—	—	—	—
6	Hopkins ら (1969)	不 明	4 年 8 カ月	死	—	+	—	—	+	腹部(予防的) 胸骨(局所)	—
7	Talerman (1971)	6 カ月来	3 カ月	死	—	+	—	+	—	鼠径リンパ節	—
9	Morin ら (1975)	数年来	3 年 3 カ月	死	—	+	+	+	—	皮膚転移	—
10	三 国 ら (1977)	数カ月来	2 カ月	死	+	両側 —	—	+	—	皮膚転移	—
5	Rosvoll ら (1968)	3 年来	1 年 6 カ月	健	+	+	両側 +	—	+	Co60(術後) 両 腹 部	—
8	Talerman (1971)	8 年来	8 カ月	健	+	+	—	—	+	3000 R 右腹部, 右鼠径部	—

みでじゅうぶんであり、その予後も良好であるので、ここでは悪性例10例について記述する (Table 3, 4). 手術療法としては Table 3, 4 に示すごとく、除睾術10、後腹膜リンパ節郭清術併用2、鼠径リンパ節摘除併用1、皮膚転移巣摘除併用2である。放射線療法としては、両側後腹膜リンパ節郭清術後の Co_{60} 照射1、後腹膜リンパ節に対する予防的照射1、腹部および鼠径リンパ節に対する照射 (3000R) 1、転移巣に対する局所的照射1である。化学療法としては、vincristine 1, actinomycin D, cytoxan, vincristine の3者併用と、さらに加うるに胸腔内への atabrine および thio-tepa の注入併用1, 5FU 注射1である。1964年度までの Mostofi ら³⁰⁾, Collins ら³¹⁾, Nagy ら³²⁾ の No. 1~4 の4例では、治療としては除睾術のみが施行されたが、転移の拡大により、いずれも、術後それぞれ5ヵ月、3ヵ月、12ヵ月、10ヵ月で死亡している。次に No. 5 の Rosvoll ら³⁷⁾ の症例では手術 (除睾術、両側後腹膜リンパ節郭清)、放射線 (Co_{60})、および化学療法 (vincristine) の三者併用療法がおこなわれ、ことに後腹膜リンパ節には、最大 $9 \times 3.5 \times 3$ cm に達する程度の転移巣が多数存在したにもかかわらず、術後1年6ヵ月の現在なお健在である。次に No. 6 の Hopkins ら²⁸⁾ の症例では、除睾術と術後の後腹膜リンパ節に対する予防的放射線照射の二者併用によって、術後3年までは無症状に経過したが、3年後はじめて胸骨に転移を認め、これに対して局所的照射を施行した。この時期には他の骨には異常を認めなかったが、術後4年後には骨盤、肋骨、脊椎、長骨などに転移をきたし、背部痛、貧血をみる。さらに2ヵ月後には硬膜に転移、脊髄の圧迫症状、汎血球減少症をきたし、術後4年8ヵ月悪液質で死亡している。以上2例の経過をもっとみると、本腫瘍に対しては放射線療法は相当の治療的ないし予防的効果を有するもののようにおもわれる。No. 7 の Talerman¹⁵⁾ の第1例では除睾術後に肺炎を起こしたために、放射線照射は実施されず、術後1.5ヵ月で右の鼠径リンパ節転移をきたし、これを摘除したが、傍大動脈リンパ節転移の拡大により、除睾術後3ヵ月余で死亡している。しかし No. 8 の第2例では除睾術後に、リンパ管造影法で後腹膜リンパ節転移を認め、右腹部および右鼠径部に対し3000Rの照射を施行し、術後8ヵ月には、まだ再発を認めていない。次に No. 9 の Morin ら⁴⁾ の症例では除睾術と後腹膜郭清が施行されたが、このリンパ節は組織学的には正常であったという。しかし除睾術後1週で尿の妊娠反応は陽性となったので、化学療法として actinomycin D 2 mg, cytoxan 1.5 g, および

vincristine 2 mg を交代に1週間隔で投与し、それぞれ6 mg, 3 g, および4 mg を投与したが、激しい下痢をきたしたため、これを中止す。しかし、それ以来 choriogonadotropin 値は正常となった。しかし除睾術後8ヵ月で、右大腿皮膚に小結節状の転移をきたし、これを摘除す。さらに8ヵ月後には同じ部位に皮膚転移の再発をみ、右肺の下肺野にも2つの転移巣 (+) となる。よって上記の3者併用の化学療法を、2週間隔で施行して、同量を投与したが、右肺の転移巣は増大を続け、右胸膜腔に滲出液 (+) となったので、この部に thio-tepa を注入す。さらに10ヵ月後には右胸膜腔に chest tube を挿入し、atabrine 200 mg を3回注入して、この tube を抜去す。しかしさらに6ヵ月後には右肺転移巣はますます増大し、除睾術後3年3ヵ月で死亡している。終りに No. 10 のわれわれの症例では、両側除睾術および皮膚転移巣摘除が施行され、化学療法として 5FU 注射が実施されたが、食欲低下のため累計23回でいちおう中止された。この症例は、初診時より貧血に傾き、左除睾術後の陰囊内血腫形成などにより、赤、白血球の減少をきたし、輸血をくり返し施行したが、改善をみるに至らず、予定された $Tele-Co_{60}$ 照射も実施しえず、右除睾術後わずか2ヵ月余で転移の拡大により死亡した。

本症例は、入院時すでに左後腹膜腔リンパ節への転移が予想され、予後の不良を思われ、5FU 注射も不じゅうぶんであり、手術療法のための症例とも見なしうる。以上10例を通観して、手術療法のための施行された症例 No. 1~4, 7 および10はそれぞれ、5ヵ月、3ヵ月、12ヵ月、10ヵ月、3ヵ月および2ヵ月で死亡している。これに反し、症例 No. 5 では、術前すでに後腹膜リンパ節に $9 \times 3.5 \times 3$ cm までの多数の転移巣を有していたにもかかわらず、これに対し除睾術とともに、両側の後腹膜リンパ節郭清、術後の Co_{60} 照射、ならびに vincristine の注射が施行され、術後1年6ヵ月にも健存している。症例 No. 6 では、除睾術後に後腹膜腔リンパ節に対して予防的放射線照射が施行され、これによって3年間は全く再発がみられず、3年後にはじめて胸骨への転移が確認されている。また症例 No. 8 においても、右腹部リンパ節の転移巣および右鼠径リンパ節に対する 3000R の照射によって、術後8ヵ月後にも再発 (一) なりという。症例 No. 5 および No. 8 は今後なおきびしい予後の追及を受くべき症例ではあるが、この3症例は本腫瘍に対しては、Hopkins ら²⁸⁾ も言及しているごとく、放射線が、補助的療法としては、有力な手段となりうることを思わしめる。次に症例 No. 9 においては、

Table 5. 悪性 androblastoma の肉眼的ならびに組織学的所見

症例 No.	著者 (年次)	腫瘍			女性化乳房
		大きさ (cm)	肉眼的所見	組織学的所見	
1	Mostofi ら (1959)	10.5×7.5	淡紅, 黄褐, 分葉状	ほとんど上皮細胞より成り, g), ρ), 2種の上皮細胞の集団があり, g) 顆粒膜細胞様の細胞集団で濾胞形成(+), ρ) 不規則に排列する細胞の充実性細胞索ないし細胞巣で管腔形成(-), 転移巣も同じ.	(+) 分化した顆粒膜細胞の作用か?
2	Collins ら (1964)	不明	不明	上皮細胞に2種あり. イ) は分化した柱状上皮で管腔形成(+), ρ) は無秩序に排列する充実性の細胞索ないし細胞巣で, その一部に管腔形成の傾向あり.	(+) 分化したセルトリ細胞の作用か?
3	Nagy ら (1964)	6×4×3	灰白, 硬靱, 副睾丸, 精索も侵さる	上皮細胞集団の一部には圧縮された管腔形成(+), 一部には充実性細胞索ないし細胞巣をみる.	(-)
4		鷲卵大	灰黄白, 一部に壊死(+), 副睾丸も侵さる	イ) 管腔(+)の細胞巣, ρ) 管腔(-)の大小不同の細胞よりなる細胞索で各細胞間に好銀性の細線維(+), ハ) 未分化の肉腫様細胞よりなる間質あり.	(-)
5	Rosvoll ら (1968)	10×7×6	灰白, 硬靱, 分葉状. 嚢腫(+)	イ) 管腔(+)の細胞巣, ρ) 管腔(-)の細胞索ないし細胞巣, ハ) 転移巣では ρ) の像のみがみられる.	(-)
6	Hopkins ら (1969)	8×4×5	黄白, 硬靱, 卵円形	イ) 管腔(+)の上皮細胞巣, ρ) 管腔(-)の顆粒膜細胞腫様の細胞巣, ハ) 転移巣は ρ) のみの像を示す.	(+) イ) の部分が主体をなすことによる?
7	Talterman (1971)	7×5×4.5 85 g	灰白黄, 硬靱, 嚢腫(+), 副睾丸も侵さる	イ) やや分化したセルトリ細胞様細胞に囲まれた管腔(+)の細胞巣, ρ) 未分化細胞の充実性細胞索ないし細胞巣, ハ) 豊富な間質ニ) 扁平な柱状細胞壁をもつ嚢腫(+), 転移巣では ρ) の像が主体をなし, たまたま イ) をみるのみ.	(-)
8		15×14×12 800 g	黄白, 硬靱, 嚢腫(+), 副睾丸も侵さる	セミノーマと誤診さる. イ) 管腔(+)の細胞巣, ρ) 未分化細胞の細胞索ないし細胞巣, ハ) 細胞性の線維性間質, ニ) 扁平な柱状細胞壁をもつ嚢腫(+).	(-)
9	Morin ら (1975)	3×3×2 の主腫瘍のまわりに星状に数コの小腫瘍をみる	黄褐, 硬靱, 副睾丸, 精索も侵さる	イ) おもな組織型は, 大型の細胞で, 核は小, 細胞質は空胞化し, 脂肪を含む細胞の集団で, 一部にコレステロール結晶の沈着(+) 2) 大型の核をもつ, 小型の細胞の集団で管腔(+), 3) 大型の多角形細胞にかこまれた管腔(+)の細胞巣で, 胎生期睾丸に似る. 核分裂(+), 4) 孤立的に Leydig 細胞様細胞集団をみる. イ), 2) の部分では間質基質は乏しいが, 3) の部分では比較的多い.	(+) おもな組織型のセルトリ細胞によるものであろう?
10	三国 ら (1977)	1) 右精索 9.5×5×4.5 170 g 2) 左精索 12×7×6 190 g 3) 皮膚転移巣 3×2×0.5 3 g	右: 黄灰白, 硬靱, 分葉状 左: 淡紅, 硬靱, 分葉状 左睾丸: 灰白, 軟, 一部に出血巣(+) 皮膚転移: 灰白硬靱	各腫瘍の組織型は全く同一である. はじめ seminoma と誤診さる. 比較的小型の上皮様細胞の充実性の細胞索ないし細胞巣で, 管腔形成(-), 間質基質は乏しい. 各腫瘍細胞間には, 好銀性のレチクリン細線維がみられる. すなわち ρ) の型のみがみられる. 右睾丸はほとんど正常. 左睾丸では, 腫瘍細胞の海にかこまれた島のように, 萎縮した遺精細管が多数みられる.	(-)

actinomycin D, cytoxan および vincristine の3者併用の化学療法が施行され、かなりの効果を示しており、これもまた、本腫瘍に対しては、有力な補助的療法となりうることを示唆しているように思われる。

生存率・転帰・予後：Table 4 に示すごとく、死亡8例のうち術後より死亡までの期間は、6ヵ月までの者は4例(50%)、6ヵ月～1年は2例(25%)、3年3ヵ月1例、4年8ヵ月1例である。すなわち除睾術後1年以内の死亡例は6例(75%)で、この死亡率75%は、三国ら(1972)⁴⁰⁾の調査した睾丸細網肉腫の術後1年以内の死亡率92.8%に迫る高率であり、本腫瘍の悪性度の相当に高いことを思わしめる。この6例は、治療として除睾術のみを受けたもの5例、除睾術とともに不妊用化学療法を受けたもの1例であり、また No. 1 および No. 10 のように、術前にすでに転移の存在が予想されていた症例である。しかし除睾術とともに、予防的放射線照射の併用された No. 6 は5年近くまで、また強力な抗癌剤を併用された No. 9 は3年3ヵ月まで生存している。次に健存例は、手術、放射線、抗癌剤の3者併用療法を受けた No. 5 の術後1年6ヵ月生存例と、手術と放射線との2者併用療法を受けた No. 8 の術後8ヵ月生存例の2例である。もちろんこの2例は今後厳重な経過観察を受くべき症例ではあるが、本腫瘍に対しては、今後強力な3者併用療法の実施が要望され、これによって、術前にすでにリンパ節への転移の予想される症例においても、完全治癒を期待しうることを示唆しているように思われる。Pugh ら(1964)⁴¹⁾は予後の良否の最も重要な指標は、除睾術施行時における転移の存在であると述べ、Talamanca¹⁵⁾は本腫瘍の予後は、その腫瘍の悪性度(malignant potential)の如何と、初診時における転移の有無に依存するとし、Mostofi¹⁴⁾は本腫瘍の約10%は悪性化をきたす、しかし患者の大多数は5年あるいはそれ以上の適当な経過観察を受けていないと述べ、また悪性腫瘍の criteria は明確に定義されていないが、かれの経験では核分裂像の増加、核の多形性、細胞の aplasia、被膜あるいは付属器への拡大および血管への侵襲などは malignancy を表示している。しかし転移の実証こそ争う余地のない悪性の証拠であり、しかも、本腫瘍におけるほとんどすべての転移は、初めの5ヵ月内に起こっていると述べている。

ここで Mostofi の悪性腫瘍の criteria が、本腫瘍においていかに表現されているかを、10例の悪性例の組織像について検討する。Table 5 に示すごとく、第1の構成要素たる上皮様細胞の集団にはイ)、ロ)の2つの pattern がみられ、イ)はある程度分化した柱状

細胞に囲まれた管腔(+)の pattern であり、ロ)は比較的小型の上皮様細胞の充実性の細胞索ないし細胞巢よりなり、管腔(-)の pattern である。イ)の型は Sertoli 細胞腫に、ロ)の型は顆粒膜細胞腫に似ている。そしてこれらの上皮様細胞には、Mostofi の記載のように、核の多形性、核分裂像の増加、細胞の aplasia などを認めうる。この2つの pattern は症例 No. 2～7 および8の7例に共通している。しかし No. 1 ではイ)の型はみられず、これに代ってg)の型がみられ、すなわちかなり分化した数層の顆粒膜細胞様細胞に囲まれた、Graaf 濾胞に酷似した濾胞(+)の細胞集団がみられ、他の部位にはロ)の型の不規則に排列された管腔(-)の細胞巢がみられる。No. 9 では上皮様細胞集団には3つの pattern がみられ、1)は上述のイ)型であり、じゅうぶんに分化し、脂肪空胞を有する大型の Sertoli 細胞の集団で、これがこの腫瘍の主体をなしている。2)は大型の核をもつ未分化の小型細胞の集団で、管腔(+)で、核分裂像(+)である。3)はより未分化の大型の多角形細胞の集団で、これも管腔(+)であるが、核分裂像は(++)で、胎生期睾丸に似ている。このほかに孤立的に Leydig 細胞様細胞の集団がみられる。すなわち No. 9 ではロ)の型はみられていない。No. 10 の著者の症例では、前述のごとく、イ)の型は全く認められなくて、ロ)の pattern だけで構成されており、特異な症例といえる。次に転移巣の組織像では、イ)、ロ)の両 pattern を呈示した No. 5 および No. 6 ではロ)の型だけがみられ、No. 7 ではロ)の型が主体となり、たまたまにイ)の型をみるにとどまる。No. 10 では原発巣と同様に、ロ)の pattern のみがみられる。すなわち転移巣における上皮様細胞集団の組織 pattern は、原発巣における、より未分化の組織 pattern が、転移巣の組織の主体となるもののように推測される。しかし No. 1 の転移巣では、No. 7 におけるごとく、比較的分化したg)の pattern もみられている。なお No. 2～4, 8 および9の症例では、転移巣の組織像についての記載がない。次に第2の構成要素たる紡錘形細胞成分は、上皮様細胞集団の間質基質成分となることになるが、この基質成分は腫瘍により、きわめて僅少のものから、かなり豊富なものまで種々である。No. 1 の症例では、その著者の Mostofi ら¹⁴⁾はほとんど全く上皮細胞のみよりなると記載しているほどであるが、著者の No. 10 においても間質基質は僅少であった。基質成分の比較的豊富な症例は、No. 4, 7, 8 および9の3)の部分である。以上、10例の組織所見を通観して、上皮様細胞成分が主体をなす症例のほう

が、紡錘形細胞成分が主体となる症例よりも多いような印象を受ける。ちなみに Table 1 に示す Mostofi ら³⁰⁾の23例においては、上皮様細胞成分および紡錘形細胞成分が主体をなす症例は、それぞれ9例（このうちの5例はほとんど全く上皮様細胞要素のみより成る）および6例であり、両成分の割合がほぼ等しい混合型が8例で、やはり、上皮様細胞成分が主体をなす症例のほうが多い。なお、悪性の10例中の No. 1 は purely epithelial tumor と見なしうる症例であるが、pure spindle cell theca-like tumor と見なしうる症例は、この10例中には見られず、後者はまれなものと思われる。次に悪性例の10例中の4例において女性化乳房が(+)であったが、その病理組織的根拠としては、No. 1 ではかなり分化した顆粒膜細胞様細胞巣が、No. 2 では分化した Sertoli 細胞巣が、No. 6 では管腔(+)の細胞巣が、No. 9 では分化した Sertoli 細胞巣が、それぞれに、これらの腫瘍の主体をなしていたことによるものと推測される。

ここで、参考として、イヌにおける Sertoli 細胞腫の悪性化の頻度についてふれる。周知のようにイヌの睾丸腫瘍のうちでは、本腫瘍は最も普通の腫瘍であり、Dow (1962)⁴²⁾によると、イヌの睾丸腫瘍 94 例中に Sertoli 細胞腫は実に36例 (38.3%) を数え、このうちの悪性例は3例 (8.3%) であったという。われわれの調査による、ヒトにおけるその14.2%に比して、かなり少ないもののように思われる。けだし Cotchin²⁶⁾によると、イヌの157例の Sertoli 細胞腫のうち、悪性例は2例 (1.2%) に過ぎなかったと記している。

睾丸腫瘍の性腺外異所性発生：われわれの症例においては、上述のごとく、この腫瘍は精索に原発し、左精索腫瘍より連続性に左睾丸に侵襲したものと推測され、いわゆる性腺外 androblastoma に該当する。一般に精索に原発する腫瘍の頻度は重松 (1960)⁴³⁾、辻 (1969)⁴⁴⁾、Gibson (1970)⁴⁵⁾ および増田ら (1975)⁴⁶⁾によると、陰嚢内腫瘍のうちでは、睾丸腫瘍に次いで多く、現在までに比較的多数の原発性腫瘍の報告がみられる。El-Badawi ら (1965)⁴⁷⁾によると精索原発の良性腫瘍 222 例のうち、睾丸腫瘍は皮様嚢腫15例、奇形腫5例がみられ、また Arlen ら (1969)⁴⁸⁾によると、精索原発の悪性腫瘍 161 例中、睾丸腫瘍としては奇形癌4例、seminoma 3例および dysembryoma 1例を挙げている。また本邦においては精索原発の悪性睾丸腫瘍としては、大塚ら (1967)⁴⁹⁾の38歳男の左精索に原発したと思われる悪性絨毛上皮腫の1例と、仲野谷ら (1970)⁵⁰⁾の11ヵ月男児の左精索に原発した胎児性癌の1例がみられる。次に androblastoma に類

する非精細胞性睾丸腫瘍の精索原発については、El-Badawi ら⁴⁷⁾によると Tedeschi ら (1951)⁵¹⁾の interstitial cell tumor? の1例をみるのみで、セルトリ系細胞腫瘍の精索原発例の報告は今のところ見当たらない。しかし Dokumov ら (1963)⁵²⁾は睾丸と homologous な卵巣において、性腺外卵巣腫瘍として、7歳の少女の左卵管膨大部の卵管采の一つに原発した、precocious puberty を伴った Sertoli-Leydig 細胞腫の1例を報告し、この症例は卵巣外 Sertoli-Leydig 細胞腫の世界における第1例であろうとしており、その組織発生については、多分に、この部に迷入した睾丸組織の細胞要素に起源するものであろうとしている。われわれの症例も、おそらく精索に迷入した primitive gonadal blastema の細胞要素に起源するものと推測せられ、両側の精索に原発した、悪性の androblastoma の世界における第1例ではないかと思われる。なお一侧の精索に原発し、これが他側の精索に転移したものではないかとも考えられるが、重松⁴³⁾、辻⁴⁴⁾、Gibson⁴⁵⁾らによると、精索への腫瘍の転移の頻度は、その腫瘍の原発の頻度に比してはるかにまれとされているので、やはり両側精索における原発と考えるのが妥当ではないかとも思われるのである。

しかし gonadal blastema の組織要素の両側精索への迷入の頻度が、本腫瘍の一侧の精索から他側の精索への転移の頻度よりも、まれなものかどうかの問題点もあり、今のところ両側原発か、一侧原発かを決定することは至難と思われる。なお睾丸における androblastoma の両側発生例は Lange ら (1960)⁵³⁾の11歳男児における1例のみである (Table 1)。

転移：10例中の全例に転移がみられているが、症例 No. 2 と No. 3 には転移部位の記載がなくて不明である。Table 3 に示すごとく、リンパ節への転移は、表在リンパ節では頸部1、鼠径部3、深在リンパ節では後腹膜腔部の5で計9で最も多く、次いで皮膚および骨の各2、副腎、肺、胸膜、心外膜および腹膜の各1である。症例6の転移部位はきわめて特異的であり、Hopkins ら²⁸⁾の剖検によると、骨系統に広範な転移があり、頭蓋、脊椎、肋骨、胸骨、骨盤および長骨群、硬膜などにおよび、骨髄は腫瘍組織に置換されて汎血球減少症をきたしている。注意深い精査にもかかわらず、右副腎に1mm 径の小転移巣をみた以外には、諸臓器への転移は証明されず、ことにリンパ節系への転移も全く認められなかった。なお念のために実施せられた前立腺の多数の切片検査においても、原発性前立腺癌の確証は得られず、またエストロジェンの分泌過多も証明されなかったという。本症例では術前の女

性化乳房(+)であり、右除睾術後にはこれの消退をみている。本腫瘍の組織所見は、Table 4 に示すごとく、イ)、ロ)の2種の上皮性組織成分を含み、女性化乳房はイ)の管腔(+)の上皮細胞巢よりのエストロゲン分泌に因るものと推測されたが、術後3年にして胸骨に発現した転移巣の組織所見は、ロ)の管腔形成のほとんど全くみられない小型の上皮性細胞の索状ないし胞巣状の増殖が主体をなしており、したがって骨系統への広範な転移にもかかわらず、女性化乳房の再発や、hyperestrogenism も証明されなかったものと推測される。以上、症例 No. 6 における骨系統への特異な転移形成について記述したが、症例数が少ないので早急な結論は慎まねばならないが、No. 10 のわれわれの症例においても骨への転移が確認されており、本腫瘍の骨への転移形成の高い傾向性を示唆しているように思われるのである。

腫瘍発生の誘因：悪性例では10例中の2例に誘因が記載されている。すなわち Nagy ら³⁰⁾の第2例では1年前に患側の左睾丸部に打撲を受けている。Morin ら⁴⁾の症例では幼少時に罹患した流行性耳下腺炎性睾丸炎による両側睾丸萎縮が認められている (Table 3)。また良性例では、Collins ら³¹⁾の第1例の6歳の男児の鼠径睾丸にこの腫瘍が発生している (Table 1)。なおわれわれの症例には誘因らしいものは認められない。すなわち悪性の10例中には睾丸の外傷1(10%)、睾丸萎縮1(10%)がみられ、良性例60例については、全症例にわたり調査しえなかったが、鼠径睾丸1が認められた。

結 論

1. 50歳の男の両側精索に原発し、連続性に左睾丸に続発したと思われる、両側精索および左睾丸の、転移を伴う androblastoma の1例を報告した。本例に対しては右高位陰睾術、次に左高位除睾術、さらに左大腿部皮膚転移巣摘除術を相次いで実施し、これに5FU (250 mg×23) の注射を併用したが、転移の拡大により右除睾術後2カ月余で死亡した。gynecomastia はみられなかった。

2. 本例を含めて現在 (1975年末) までに集計しえた70例の androblastomas について、統計的および文献的考察を加えた。

3. 発生年齢は0～4歳、ことに1歳以下に最高のピークを、次に30～34歳に第2のピークを有する二峰性分布を示す。最年少は生後5時間、最年長は90歳である。

4. 患側は左26 (55.3%)、右20 (42.5%)、両側1

(2.1%) で、今のところ、左にやや多い。

5. 腫瘍は無痛性、大きさは種々、硬度は硬靱であることが特徴である。剖面は分葉状、その色は黄、灰白が多い。腫瘍実質の一部に嚢腫形成(+)のものもある。

6. gynecomastia の発現の頻度は、全体としては15/70 (21.4%) であるが、良性例のみでは11/60 (18.3%)、悪性例のみでは4/10 (40%) であり、今のところ悪性例における頻度は、良性例のその2倍の高頻度を示す。悪性例の4例における gynecomastia の発現した病理組織的根拠としては、症例 No. 1 ではかなり分化した顆粒膜細胞様細胞巢が、No. 2 では分化した Sertoli 細胞巢が、No. 6 では管腔(+)の細胞巢が、ならびに No. 9 では分化した Sertoli 細胞巢が、それぞれに、これらの腫瘍の主体をなしていたことによるものと推測せられる。

7. gynecomastia を伴う症例では、その尿中の女性ホルモン値の上昇や、尿中の gonadotropin 値の上昇がみられるが、これらの値が正常値の範囲内にとどまる症例もみられている。

8. 組織所見：本腫瘍は上皮様細胞要素と紡錘形細胞要素との2つの要素で構成されている。悪性例10例においては、第1の構成要素たる上皮様細胞の集団にはイ)、ロ)の2つの pattern がみられ、イ)はある程度分化した柱状細胞に囲まれた管腔(+)の pattern であり、ロ)は比較的小型の上皮様細胞の充実性の細胞索ないし細胞巢で、管腔(-)の pattern である。この2つの pattern は10例中の7例において共通してみられたが、No. 1 ではロ)の pattern はみられたが、イ)の pattern はみられず、これに代って g) の pattern がみられ、すなわち、かなり分化した、数層の顆粒膜細胞様細胞に囲まれた濾胞形成(+)の pattern である。No. 9 では3つの pattern がみられ、1)はイ)の pattern であり、じゅうぶんに分化し脂肪空胞を有する Sertoli 細胞の集団であり、2)、3)はともに管腔(+)の pattern ではあるが、それぞれの細胞はいずれも未分化で、Mostofi のいう、悪性の criteria を具有する細胞の集団である。すなわち本症例ではロ)の pattern はみられていない。このほかに本症例では Leydig 細胞様細胞の孤立的集団がみられた。No. 10 の著者の例ではイ)の pattern は全くみられず、ロ)の pattern だけで構成されており、特異な症例といえる。

なお転移巣における上皮様細胞集団の組織 pattern は、原発巣における、より未分化の組織 pattern が、転移巣の組織の主体となるもののように推測せられる。

次に第2の構成要素たる紡錘形細胞成分は、この腫瘍の間質成分となるが、この基質成分は腫瘍により、きわめて僅少のものから、豊富なものまで種々である。

以上、悪性例の10例および Mostofi らの22例の組織像を通観して、本腫瘍においては、上皮様細胞成分が主体となる症例のほうが、紡錘形細胞成分の主体となる症例よりも多いように思われる。

9. 組織学的鑑別診断：管腔構造の明らかなでない索状ないし胞巣状の、充実性増殖を呈する型の androblastoma においては、seminoma との鑑別が問題となるが、これには Nagy ら³⁹⁾の説のごとく、本腫瘍の細胞間に存在する嗜銀性細線維の証明が、決定的な鑑別点となろう。また従来より、seminoma に特有とされているリンパ球の浸潤の有無もまた有力な決め手となる。また teratoma との鑑別については、多数の section の検査によって、それぞれの腫瘍に特徴的な組織 pattern を確認することで、解決されよう。

10. 治療：悪性例の10例においては、手術療法としては、除睾術10、後腹膜リンパ節郭清術併用2、鼠径リンパ節摘除術併用1、皮膚転移巣摘除術併用2である。放射線療法としては、両側後腹膜リンパ節郭清術後の Co₆₀ 照射1、後腹膜リンパ節に対する予防的照射1、腹部および鼠径リンパ節に対する放射線 (3000R) 照射、胸骨転移巣に対する局所的照射1である。化学療法としては vincristine 1, actinomycin D, cytoxan, および vincristine の3者併用と、さらに加うるに胸腔内への atabrine および thio-tepa の注入の併用1および 5FU の注射1である。なお手術、放射線および化学療法の3者併用療法の実施された症例は1例のみである。以上の10症例に対する治療法の検討より、本腫瘍に対しては手術療法のみでは不じゅうぶんであるが、これの補助的療法としては、放射線療法および化学療法は、それぞれにすぐれた予防的ならびに治療的効果を有することが示されたが、理想的には、No. 5 の症例におけるように、手術、放射線および化学療法の3者併用療法の実施が望ましい。

11. 生存率・転帰・予後：10例中健存例は術後8ヵ月および1年6ヵ月の2例のみで、いまだ5年生存者はみられない。死亡例は8例、このうち除睾術後1年以内の死亡例は6例 (75%) であり、本腫瘍の高い悪性度を示唆している。しかし1年以内の死亡例のうちの6例は手術療法のみを受けた症例であり、手術と化学療法併用の1例は術後3年3ヵ月、また手術と放射線療法併用の1例は術後5年近くまで生存しえた。この事実は本腫瘍においても、手術、放射線および化学

療法の3者併用療法の実施が要望され、これによって本腫瘍の予後は著しく改善されるものと期待される。

12. 転移：リンパ節への転移は9 (表在4, 深在5) で最も多く、次いで骨、皮膚の各2、副腎、肺、胸膜、心外膜および腹膜の各1である。症例 No. 6 では全骨系統への広範な転移がみられたが、リンパ節系統への転移は (一) で、右副腎に微細な転移巣が確認されたほかには、他の臓器への転移も (一) であった。症例数が少ないので早急な結論は慎むべきではあるが、著者の症例においても骨転移 (+) であり、本腫瘍の骨への転移形成の高い傾向性を示唆するもののように思われる。

13. 誘因：悪性の10例中には、睾丸外傷1 (10%) および耳下腺炎後の睾丸萎縮1 (10%) がみられ、良性の60例については、全症例にわたって調査しえなかったが、鼠径部潜伏睾丸1が認められた。

14. androblastoma の性腺外異所性発生：精索に、すなわち睾丸外に発生した原発性の androblastoma の症例の報告は、現在 (1975年末) までの文献には見当たらない。著者のこの症例は世界での第1例ではないかと思われる。その組織発生については、おそらくは多分に、精索に迷入した primitive gonadal blastema の細胞要素に起源するものと推測せられる。

本症例の病理組織診断については、和歌山県立医科大学病理学教室永井教授に負うところはなほ多い、記して深甚なる感謝の意を表します。また血清蛋白分画の解析に、御助力いただいた本院岩橋内科部長に深謝いたします。

文 献

- 1) Teilum, G.: Cancer, **11**: 769, 1958.
- 2) Teilum, G.: Acta path. et microbiol. Scandinav., **23**: 252, 1946. cited from Teilum¹⁾.
- 3) Mostofi, F. K. et al.: Cancer, **12**: 944, 1959.
- 4) Morin, L. J. et al.: J. Urol., **114**: 476, 1975.
- 5) 伊藤・ほか：臨皮泌, **8**: 362, 1954.
- 6) 志田・ほか：ホと臨床, **7**: 801, 1959.
- 7) 福島・ほか：臨泌, **22**: 793, 1968.
- 8) 竹中・ほか：臨泌, **29**: 505, 1975.
- 9) Dixon, F. J. et al.: Cancer, **6**: 427, 1953.
- 10) Collins, D. H. et al.: Brit. J. Urol., **36**: (Suppl.) 1, 1964.
- 11) Mostofi, F. K.: Cancer, **32**: 1186, 1973.
- 12) Shiffman, M. A.: J. Urol., **98**: 493, 1967.
- 13) Fergusson, J. D.: Brit. J. Urol., **34**: 407, 1962.
- 14) Pugh, R. C. B.: Brit. J. Urol., **34**: 393, 1962.
- 15) Talerman, A.: Cancer, **28**: 446, 1971.

- 16) Jones, T. C. et al.: Bull. Internat. A. M. Mus., **31**: 36, 1950. cited from Mostofi et al.³⁾
- 17) Mostofi, F. K.: Bull. New York Acad. Med., **28**: 684, 1952. cited from Mostofi et al.³⁾
- 18) Cohen, J. et al.: A. M. A. Arch. Path., **56**: 488, 1953, cited from Teilum¹⁾.
- 19) Melicow, M. M.: J. Urol., **73**: 547, 1955.
- 20) Philip: Postgrad. M. J., **36**: 190, 1960. cited from Shiffman¹²⁾.
- 21) Holtz, F. et al.: Cancer, **16**: 982, 1963.
- 22) Abell, M. R. et al.: Cancer, **21**: 852, 1968.
- 23) 高橋・ほか：泌尿紀要, **19**: 451, 1973.
- 24) Hauser, R. et al.: Am. J. Surg., **110**: 876, 1965.
- 25) Whitmore, W. F., Jr.: Urology edit. by Campbell, M. F. 3rd edit., p. 1213, W. B. Saunders Co., Philadelphia-London-Tronto, 1970.
- 26) Cotchin, E.: J. Comp. Path. Ther., **70**: 232, 1960. cited from Talerman¹⁵⁾.
- 27) Gonder, M. J. et al.: J. Urol., **84**: 357, 1960.
- 28) Hopkins, G. B. et al.: Cancer, **23**: 463, 1969.
- 29) Scully, R. E.: New Engl. J. Med., 1955. cited from Collins et al.³¹⁾
- 30) Østergaard, E.: J. Clin. Endocrinol., **7**: 438, 1947. cited from Mostofi et al.³⁾
- 31) Collins, D. H. & Symington, T.: Brit. J. Urol., **36**: (Suppl.)52, 1964.
- 32) Lewis, L. G. et al.: J. Urol., **64**: 518, 1950.
- 33) Meyer, R.: Beitr. z. Path. Anat. u. z. Allg. Path., **84**: 485, 1930. cited from Teilum¹⁾.
- 34) Laskowski, J.: Endocrinol. Polska, **3**: 337, 1952. cited from Teilum¹⁾.
- 35) 落合：日本泌尿器科全書, 8. II, p. 391, 1960. 金原出版, 東京・京都.
- 36) Perch, G. A. et al.: J. Urol., **97**: 880, 1967.
- 37) Rosvoll, R. V. et al.: Cancer, **22**: 8, 1968.
- 38) Culp, D. A. et al.: J. Urol., **76**: 162, 1956.
- 39) Nagy, L. et al.: Zbl. Allg. Path., **105**: 215, 1964.
- 40) 三国・ほか：泌尿紀要, **18**: 743, 1972.
- 41) Pugh, R. C. B. et al.: Brit. J. Urol., **36**: 107, 1964 (Suppl.).
- 42) Dow, C.: J. Comp. Path. Ther., **72**: 247, 1962. cited from Rosvoll et al.³⁷⁾
- 43) 重松：日本泌尿器科全書, **6**: p. 138, 1960. 金原出版, 東京・京都.
- 44) 辻：現代外科大系, 42A, p. 146, 1969. 金原出版, 東京・京都.
- 45) Gibson, T. E.: Urology edit. by Campbell, M. F. 3rd edit., p. 1230, W. B. Saunders Co., Philadelphia-London-Tronto, 1970.
- 46) 増田・ほか：臨泌, **29**: 149, 1975.
- 47) El-Badawi, A. A. et al.: J. Urol., **94**: 445, 1965.
- 48) Arlen, M. et al.: Cancer, **23**: 525, 1969.
- 49) 大塚・ほか：癌の臨床, **13**: 519, 1967.
- 50) 仲野谷・ほか：臨泌, **24**: 735, 1970.
- 51) Tedeschi et al. (1951). cited from El-Badawi et al.⁴⁷⁾
- 52) Dokumov, S. et al.: J. Clin. Endocrinol., **23**: 1262, 1963.
- 53) Lange, J. et al.: J. Urol. et Nephrol., **66**: 259, 1960.
- 54) Abell, M. R. and Holtz, F.: Am. J. Obst. Gynec., **93**: 850, 1965.
- 55) Fuglsang, F. et al.: Acta chir. scandinav., **112**: 405, 1957. cited from Mostofi et al.³⁾
- 56) Fam, A. et al.: J. Urol., **79**: 859, 1958.
- 57) Bormel, P. et al.: J. Urol., **86**: 119, 1961.
- 58) Batsakis, J. G.: Arch. Path., **72**: 27, 1961.

(1977年5月16日受付)