

精索原発の脱分化型脂肪肉腫の1例

高岡 直澄¹, 小堀 豪¹, 恵 謙¹新村 和也², 長谷川 匡³, 諸井 誠司¹¹浜松労災病院泌尿器科, ²浜松医科大学腫瘍病理学講座, ³札幌医科大学病理診断科

A CASE OF DEDIFFERENTIATED LIPOSARCOMA OF THE SPERMATIC CORD

Naoto TAKAOKA¹, Go KOBORI¹, Yuzuru MEGUMI¹,Kazuya SHINMURA², Tadashi HASEGAWA³ and Seiji MOROI¹¹The Department of Urology, Hamamatsu Rosai Hospital²The Department of Tumor Pathology, Hamamatsu University School of Medicine³The Department of Surgical Pathology, Sapporo Medical University School of Medicine

A 74-year-old man was referred to the department of general surgery in our hospital because of a painless right scrotal swelling persisting for three months. On physical examination, the patient was found to have an inguinal hernia. The patient underwent laparoscopic transabdominal preperitoneal repair, but no inguinal hernia was detected. The patient was referred to our department for a suspected tumor of the spermatic cord. Computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) showed a clear-bordered and homogeneous mass without fat in the right spermatic cord. The findings from the imaging indicated that the mass was benign, but we suspected a malignant tumor because of the rapid enlargement. We performed a right high orchiectomy with a wide excision. Histopathological diagnosis was dedifferentiated liposarcoma with a myxofibrosarcoma-like pattern. He is alive one year after surgery with no recurrence. When a spermatic cord tumor is detected, we need to keep in mind the possibility of malignancy, because it is difficult to make a diagnosis from imaging alone.

(Hinyokika Kiyo 65 : 529-532, 2019 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_65_12_529)

Key words : Spermatic cord, Dedifferentiated liposarcoma

緒 言

原発性精索腫瘍は比較的稀な疾患である。今回、画像所見では術前診断が困難であったが、臨床経過から悪性腫瘍を疑った結果、断端陰性を得た精索原発の脱分化型脂肪肉腫の1例を経験したので、若干の考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 74歳, 男性

主 訴 : 無痛性右陰嚢腫大

既往歴 : 16歳, 虫垂炎手術, 65歳, 右副腎腺腫手術。

家族歴 : 特記事項なし。

現病歴 : 3カ月前より右陰嚢腫大を自覚し、手拳大まで増大したため当院外科を受診した。臨床所見から右鼠径ヘルニアの診断のもと、腹腔鏡下右鼠径ヘルニア根治術を施行した。しかし、腹腔内にヘルニアは認めず、陰嚢内に腫瘤を触知したため当科紹介となった。

現 症 : 身長 169.0 cm, 体重 72.5 kg

理学的所見 : 右陰嚢に手拳大の可動性のある表面平

滑で弾性軟な腫瘤を触知した。

末梢血液検査および血液生化学検査 : T-CHO 238 mg/dl, CRP 1.66 mg/dl と軽度高値を認めた。腫瘍マーカーに異常は認めなかった。

画像所見 : 超音波検査では右精索に内部均一かつ iso echoic な充実性腫瘍を認めた。造影 CT では、右陰嚢から鼠径部に 55×56×104 mm の境界明瞭かつ外縁が造影される内部均一な腫瘤を認めた (Fig. 1)。明らかなリンパ節転移や遠隔転移は認めなかった。単純 MRI では、腫瘍は T1 強調像では低信号、T2 強調像



Fig. 1. The mass in the right spermatic cord mass (arrow) on enhanced pelvic CT.

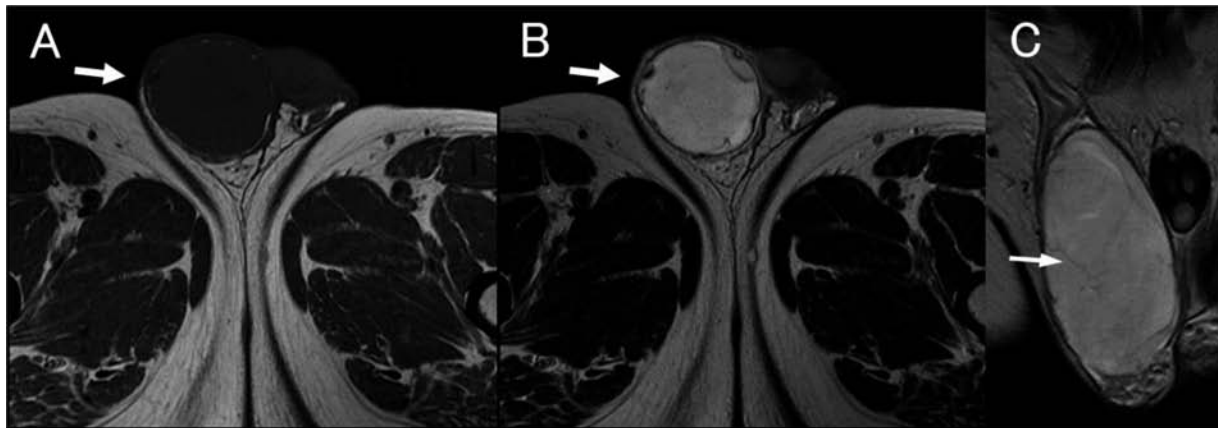


Fig. 2. Pelvis MRI (arrow: the mass): (A) T1-weighted image axial. (B) T2-weighted image axial. (C) T2-weighted image coronal.

では高信号を示した (Fig. 2A, B). 腫瘍内部は一部隔壁構造を認め (Fig. 2C), 精巣や精巣上体との連続性は認めなかった.

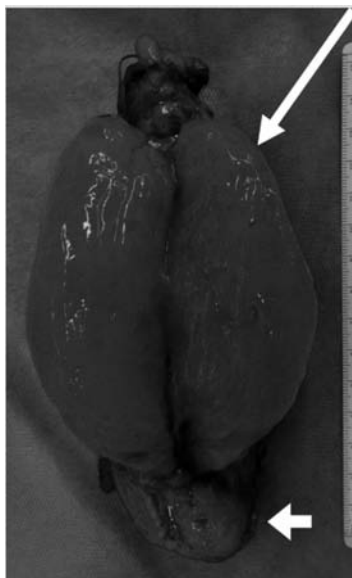


Fig. 3. Macroscopic finding of the surgical specimen. The right testis (short arrow) and the mass (long arrow).

治療経過: 画像上悪性を示唆する所見は乏しかったが, 3カ月の間に手拳大に増大した経過から悪性の可能性を考慮し, 右精索腫瘍の診断にて右高位精巣摘除術を施行した. 術中所見では周囲との癒着は認めず, 腫瘍より外側の周囲組織の層で全周性に剥離し摘出した.

摘出標本: 切除重量は 254 g, サイズは 9.7 cm 大であった. 腫瘍断面は均一かつ黄色透明なゼリー状の成分より成っていた (Fig. 3).

病理学的検査所見: 粘液状基質を背景に, 大小不同の紡錘形細胞が多結節状に増殖しており, 介在する血管形成や脂肪細胞を伴っていた (Fig. 4A, B). 腫瘍壊死は認めなかった. 免疫染色では, 紡錘形細胞は vimentin, cyclin dependent kinase 4 (CDK4) が陽性で, murine double minute 2 (MDM2), desmin, CD34 が一部陽性, S-100, signal transducer and activator of transcription 6 (STAT6), epithelial membrane antigen (EMA) が陰性であった. 以上より, 低悪性度粘液線維肉腫形態の脱分化像を示す脱分化型脂肪肉腫と診断された.

臨床経過: 病理学的診断にて切除断端陰性のため追加治療は行わず, 術後1年の時点では再発や転移を認

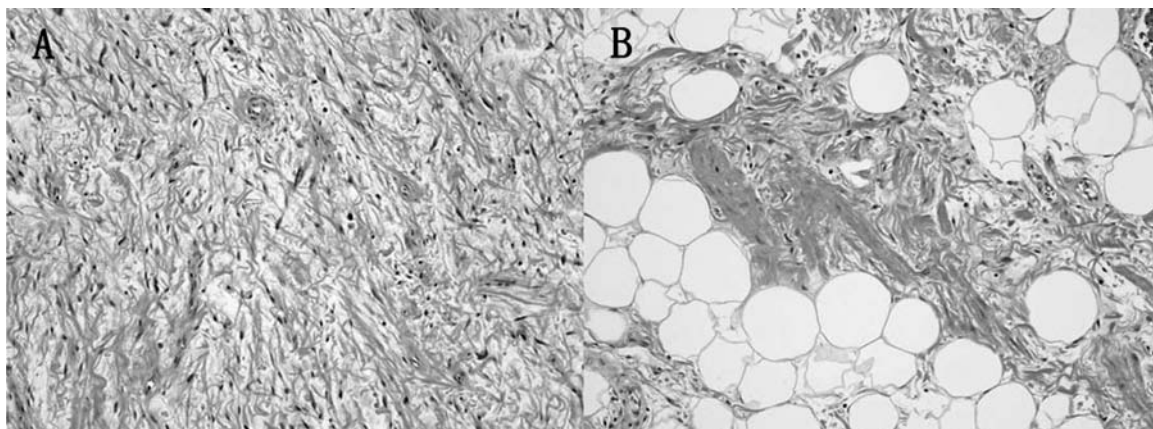


Fig. 4. Microscopic appearance showed that the tumor is composed of spindle cells, blood vessels and fat cells (A, B).

めていない。

考 察

原発の傍精巣腫瘍は珍しく陰嚢内に発生するすべての腫瘍の7~10%と言われており、成人ではその内の75%以上が精索から発生する¹⁾。精索は外精筋膜をはじめとする層構造で覆われていることや、血管や神経など多数の構造物を含むことから、精索から発生する腫瘍は20種類以上報告されている²⁾。

精索腫瘍の多くは片側性かつ緩徐に発育し¹⁾、無痛性の鼠径部もしくは陰嚢の腫大を特徴とする³⁾。急速に増大する、サイズが大きい、有症状の腫瘍の場合は悪性の疑いがあるとされている³⁾が、疼痛を伴う脂肪腫や1年間に緩徐に増大した脱分化型脂肪肉腫も報告されている^{4,5)}。また、動悸やめまいを伴う精索のパラングリオーマも報告されており⁶⁾、様々な随伴症状を呈する場合がある。

精索腫瘍の画像診断では、超音波検査が精巣内か精巣外かを感度95~100%で鑑別できるため、陰嚢内の異常に対して最初に行うべき検査である⁷⁾。精索腫瘍の鑑別疾患は、ヘルニアや精巣上体嚢胞、精液瘤、精索水腫、陰嚢膿瘍、急性/慢性精巣上体炎、肉芽腫、結核、ブルセラ症、真菌感染、サルコイドーシス、梅毒などがあり^{8,9)}、一部は超音波検査にて診断することができる。しかし、腫瘍の場合は超音波検査では特異的な所見はない⁸⁾。CTは病期診断に有用であり、MRIは周囲組織との解剖学的関係を含めた腫瘍の位置や特徴を把握できる⁸⁾。特にMRIは脂肪を検出できるため、脂肪腫や脂肪肉腫の診断に有用である⁸⁾。脂肪肉腫の特徴的な画像所見は、脂肪成分の存在⁸⁾や、腫瘍が分葉状であることが挙げられる¹⁰⁾。また、脂肪信号の占める割合が10%以下とされている粘液型脂肪肉腫の場合であっても、90%以上の症例ではMRIは脂肪検出が可能と考えられている¹¹⁾。一方で、脂肪成分がごく少量の場合は、脂肪肉腫や平滑筋肉腫などの悪性腫瘍の画像上の診断は困難である¹²⁾。軟部腫瘍の場合、辺縁の性状は血管腫など良性疾患であっても浸潤性に発育する場合があることや、肉腫もしばしば偽被膜を形成し境界明瞭かつ辺縁平滑なことが多く、悪性の鑑別の参考にはならない¹³⁾。また、精索腫瘍の多くがMRIではT1強調画像にて低信号、T2強調画像にて高信号となり、不均一な造影効果を伴う腫瘍であるため、良性悪性の鑑別が困難な場合が多い¹⁴⁾。PETは再発や転移の検索に有用であり、高集積を示した場合は悪性病変である可能性が高いが、脂肪肉腫や悪性リンパ腫では低集積の場合もある¹⁵⁾。

生検は、脂肪肉腫や横紋筋肉腫に対して穿刺吸引細胞診が術前診断に有用であった報告がある一方で、切開生検や術中迅速を行ったが診断できなかった脂肪肉

腫の報告もあり、術前の生検の意義については確立していない¹⁶⁻¹⁹⁾。

本症例では、増大傾向を示した点や用手還納できない点が鼠径ヘルニアと合致せず、初診時の診察が不十分であった可能性がある。画像所見から明らかな脂肪成分は認めず、境界明瞭かつ内部が比較的均一な腫瘤であったことから、当初良性腫瘍が疑われたが、腫瘍が3カ月間に手拳大に増大した経過から、精索の悪性腫瘍を想定したことによって、手術により断端陰性をえることができた。本症例のように画像所見、特にMRIから脂肪成分が明らかではない精索の脂肪肉腫は稀であり、このように精索腫瘍の場合は術前に良性悪性の鑑別診断が困難な場合が多く、臨床所見や画像所見から総合的に判断し、常に脂肪肉腫など悪性腫瘍を念頭に置き、周囲組織を含めた高位精巣摘除術を検討することが必要である。

結 語

精索原発の脱分化型脂肪肉腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。画像上精索腫瘍の良性悪性の鑑別は困難な場合が多いため、臨床所見などから悪性が示唆されれば、脂肪肉腫などの悪性腫瘍を念頭に置いた治療を積極的に考慮すべきである。

文 献

- 1) Rodriguez D and Olumi AF: Management of spermatic cord tumors: a rare urologic malignancy. *Ther Adv Urol* **4**: 325-334, 2012
- 2) Dagur G, Gandhi J, Kapadia K, et al.: Neoplastic diseases of the spermatic cord: an overview of pathological features, evaluation, and management. *Transl Androl Urol* **6**: 101-110, 2017
- 3) Vagnoni V, Brunocilla E, Schiavina R, et al.: Inguinal canal tumors of adulthood. *Anticancer Res* **6**: 2361-2368, 2013
- 4) Lilly MC and Arregui ME: Lipomas of the cord and round ligament. *Ann Surg* **235**: 586-590, 2002
- 5) Christodoulidou M, Khetrapal P, Edmunds L, et al.: Paratesticular liposarcoma and contralateral angiolipoma in a 60-year-old patient. *BMJ Case Rep* doi: 10.1136/bcr-2015-212078
- 6) Gontarz B, Hegde P and McFadden D: Paraganglioma of the spermatic cord: a case report and literature review. *Int J Surg Case Rep* **60**: 368-370, 2019
- 7) Frates MC, Benson CB, DiSalvo DN, et al.: Solid extratesticular masses evaluated with sonography: pathologic correlation. *Radiology* **204**: 43-46, 1997
- 8) Akbar SA, Sayyed TA, Jafri SZ, et al.: Multimodality imaging of paratesticular neoplasms and their rare mimics. *Radiographics* **23**: 1461-1476, 2003

- 9) Secil M, Kefi A, Gulbahar F, et al. : Sonographic features of spermatic cord leiomyosarcoma. *J Ultrasound Med* **23** : 973-976, 2004
- 10) Arkun R, Memis A, Akalin T, et al. : Liposarcoma of soft tissue : MRI findings with pathologic correlation. *Skeletal Radiol* **26** : 167-172, 1997
- 11) Walker EA, Salesky JS, Fenton ME, et al. : Magnetic resonance imaging of malignant soft tissue neoplasms in the adult. *Radiol Clin North Am* **49** : 1219-1234, 2011
- 12) Woodward PJ, Schwab CM and Sesterhenn IA : From the archives of the AFIP: extratesticular scrotal masses: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* **23** : 215-240, 2003
- 13) 江原 茂 : 骨・軟部腫瘍の鑑別のポイント. 画像診断増刊号 **39** : 142-145, 2019
- 14) Wolfman DJ, Marko J, Gould CF, et al. : Mesenchymal extratesticular tumors and tumorlike conditions : from the radiologic pathology archives. *Radiographics* **35** : 1943-1954, 2015
- 15) Suzuki R, Watanabe H, Yanagawa T, et al. : PET evaluation of fatty tumors in the extremity : possibility of using the standardized uptake value (SUV) to differentiate benign tumors from liposarcoma. *Ann Nucl Med* **19** : 661-670, 2005
- 16) Dalla Palma P and Barbazza R : Well-differentiated liposarcoma of the paratesticular area : report of a case with fine-needle aspiration preoperative diagnosis and review of the literature. *Diagn Cytopathol* **6** : 421-426, 1990
- 17) Daneshbod Y, Monabati A, Kumar PV, et al. : Paratesticular spindle cell rhabdomyosarcoma diagnosed by fine needle aspiration cytology : a case report. *Acta Cytol* **49** : 331-334, 2005
- 18) 野村賢太郎, 富田雅人, 宮田倫明, ほか : 当科における脱分化型脂肪肉腫の治療成績. 整外と災外 **67** : 624-627, 2018
- 19) 長井 潤, 松井孝之 : 精巣・精索脂肪肉腫の1例. 泌尿器外科 **23** : 241-243, 2010

(Received on May 27, 2019)

(Accepted on August 29, 2019)