

精巣を温存しえた精巣 Adenomatoid tumor の 1 例

三井 要造¹, 上田 康生¹, 鈴木 透¹, 新長真由美²
 樋口 喜英¹, 邱 君¹, 丸山 琢雄¹, 近藤 宣幸¹
 野島 道生¹, 山本 新吾¹, 廣田 誠一², 島 博基¹

¹兵庫医科大学泌尿器科学教室, ²兵庫医科大学病院病理部

A CASE OF ADENOMATOID TUMOR OF THE TESTIS TREATED BY TESTIS-SPARING SURGERY: A CASE REPORT

Yozo MITSUI¹, Yasuo UEDA¹, Toru SUZUKI¹, Mayumi SHINCHO²,
 Yoshihide HIGUCHI¹, Jun QIU¹, Takuo MARUYAMA¹, Nobuyuki KONDOH¹,
 Michio NOJIMA¹, Shingo YAMAMOTO¹, Seiichi HIROTA² and Hiroki SHIMA¹

¹The Department of Urology, Hyogo College of Medicine

²The Department of Surgical Pathology, Hyogo College of Medicine

A 44-year-old man was referred to our hospital with a chief complaint of a painless left intrascrotal mass, palpable at the lower portion of the left testis. Serum levels of tumor markers, human choriogenic gonadotropin (hCG), hCG- β , and alpha fetoprotein were within the normal limits. Ultrasonography revealed a hyperechoic mass 13 mm in diameter, which was demonstrated as a hypovascular tumor by Gadtrinium-enhanced magnetic resonance imaging. Since the tumor was diagnosed as a benign tumor by frozen section examination intraoperatively, testis-sparing surgery was performed. Histological examination revealed adenomatoid tumor originating from the tunica albuginea of testis.

Adenomatoid tumor of the testis is a rare benign tumor, and the present case is the 36th one in the Japanese literature.

(Hinyokika Kiyo 54 : 383-386, 2008)

Key words : Adenomatoid tumor, Testicular tumor

緒 言

Adenomatoid tumor は男女の生殖器に発生する良性腫瘍であり, 男性では主に精巣上体で認められ, 精巣および精巣白膜に発生することは稀である¹⁾. 今回われわれは腫瘍核出手術を施行して精巣温存が可能であった1例を経験したので報告する.

症 例

患者 : 44歳, 男性

主訴 : 左陰嚢内無痛性腫瘍

既往歴 : アトピー性皮膚炎

家族歴 : 特記すべき事項なし

現病歴 : 2007年6月16日, 左陰嚢内の無痛性の硬結に気づき当科を受診. 各種腫瘍マーカーはすべて正常であり, 触診, 超音波検査およびMRI所見から良性腫瘍を考えたが, 悪性腫瘍の可能性も完全には否定できず, 患者の強い希望もあり, 手術目的で同年9月18日入院となった.

入院時現症 : 身長 170.5 cm, 体重 68.8 kg, 血圧 122/88 mmHg, 体温 36.3°C. 左精巣下極付近に小指

頭大の無痛性, 弾性硬の腫瘍を触知した. その他の身体所見には異常を認めなかった.

入院時検査所見 : 末梢血一般 ; WBC 6,250/ μ l, RBC 453×10^4 / μ l, Hb 14.2 g/dl, Ht 44.1%, PLT 32.3×10^4 / μ l. 血液生化学 ; TP 6.9 g/dl, AST 16 U/l, ALT 22 U/l, LDH 163 U/l, CK 74 U/l, BUN 11 mg/dl, Cr 0.75 mg/dl, Na 141 mEq/l, K 3.7 mEq/l, Cl 105 mEq/l, CRP 0.1 mg/dl. 腫瘍マーカー ; AFP 0.7 ng/ml, hCG 0.4 mIU/ml 以下, hCG- β 0.1 ng/ml 以下, CEA 1.7 ng/ml. 検尿, 尿沈渣 ; 異常所見を認めず.

画像所見 : 精巣超音波検査では, 左精巣下極に径 10 mm 大の腫瘍を認め, 周囲は境界明瞭で, 内部は比較的 hyperechoic pattern を呈した (Fig. 1). MRI では T1 および T2 強調画像で正常精巣より低信号を呈し, T1 ガドリニウム造影では造影効果の乏しい腫瘍として描出された (Fig. 2). 以上の所見は典型的な悪性腫瘍と異なっており, 類表皮嚢胞などの良性腫瘍が示唆された.

手術所見 : 十分なインフォームドコンセントのもと, 2007年9月19日手術を施行した. 悪性である場合

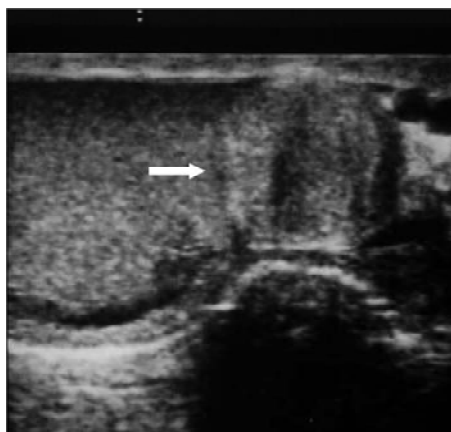


Fig. 1. Scrotal ultrasonography shows a relatively hyperechoic tumor located on the surface of the left testis (arrow).

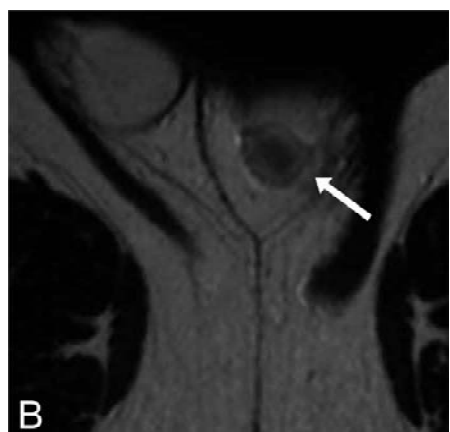
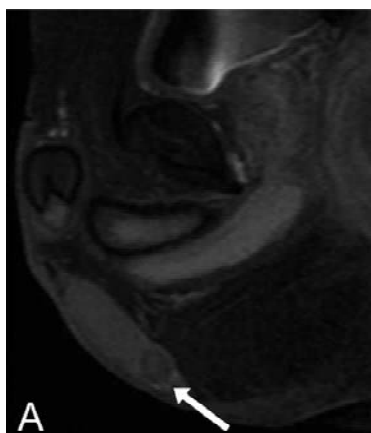


Fig. 2. A: Gadolinium-enhanced sagittal MRI T1-weighted image shows a hypovascular mass (arrow). B: Axial MRI T2-weighted image shows the tumor as hypointense mass (arrow).

も考慮し、左鼠径部斜切開にて鼠径管内へ到達した後、精巣への血流を一時遮断した。続いて左陰嚢内容を脱転し観察したところ、精巣下極の白膜から連続する直径 13 mm 大、白色調の表面平滑な腫瘍を認めた (Fig. 3)。術中迅速病理組織診断 (frozen section examination : 以下 FSE) にて悪性所見を認めなかつ

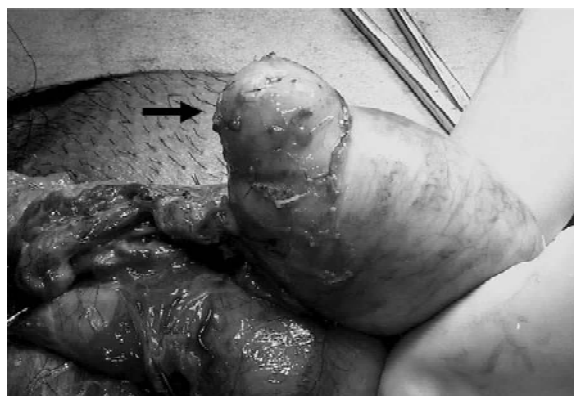


Fig. 3. The well-demarcated tumor arising from the tunica albuginea of the left testis (arrow).

たため、腫瘍核出術を行い精巣の血流を再開した後、創部を閉創し手術終了とした。

病理組織所見：HE 染色で腫瘍は精巣白膜より外側へ向かって発生しており、類円形の核を有する腫瘍細胞が、拡張した腺管様あるいは索状に増殖する像を認めた。また細胞質内に空胞を伴い、間質は硝子化した線維性結合組織からなっていた (Fig. 4a)。免疫組織学的染色では cytokeratin AE1/AE3 陽性、EMA 陰性、calretinin 陽性 (Fig. 4b) が陽性であった。以上

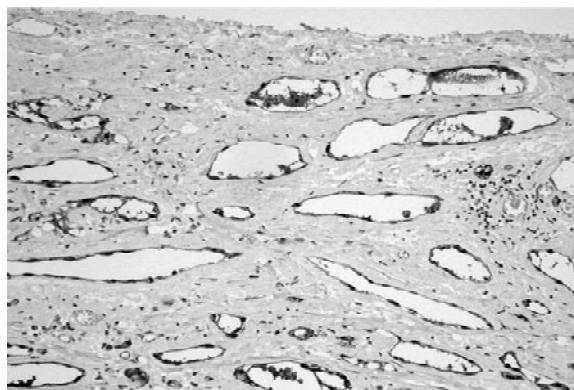


Fig. 4. Pathological finding of the tumor. (A) The plump epithelial-like cells having round nucleus show glandular and tubular structures (HE stain $\times 100$). (B) The tumor cells were positive for calretinin ($\times 100$).

より精巣白膜より発生した adenomatoid tumor と診断した。

考 察

Adenomatoid tumor は1945年に Golden と Ash ら²⁾により最初に記載された男女の生殖器に発生する良性腫瘍である。発生起源が明確でないため adenoma ではなく adenomatoid tumor と呼ばれているが、最近では中皮由来説が有力であるとされており^{3,4)}、自験例も中皮細胞に特異的な calretinin が陽性であった。好発年齢は30～50歳代で性差はなく、男性では精巣上体や精索に、女性では卵管、子宮において認められる。2000年に藤本ら¹⁾が本邦における男性の adenomatoid tumor 131例について集計し、発生部位としては精巣

上体が最も多く97例(74%)であったと報告している。また精巣上体に発生する腫瘍は圧倒的に良性腫瘍が多く、その中でも adenomatoid tumor が約半数を占めるともいわれている⁵⁾。一方自験例のように精巣白膜から発生する症例は23例(18%)と稀であり¹⁾、その後の報告例と自験例を含めても、本邦では検索しえた限り現在まで36例の報告があるのみである(Table 1)。以下本邦における精巣 adenomatoid tumor 36例について検討する。

年齢の中央値は38歳で患側は右側が13例(36%)、左側が22例(61%)、不明1例(3%)と左側に多い傾向が見られた。大きさは米粒大から小手拳大と幅があるが、直径が5 cm を超えることは稀であり、通常片側性、孤立性で、球形ないし卵型を呈す境界明瞭な

Table 1. Summary of reported cases with adenomatoid tumor of the testis in Japan

No.	報告者	報告年	年齢	患側	大きさ	術前診断	術式
1	菊池ら	1968	34	左	拇指頭大	結核	腫瘍摘出術
2	内藤ら	1973	30	左	鶏卵大	精巣腫瘍	精巣摘除術
3	梅津ら	1978	1	左	拇指頭大	—	—
4	安間ら	1980	19	左	小指頭大	—	—
5	安間ら	1980	35	左	—	—	—
6	安間ら	1980	15	左	鶏卵大	精巣腫瘍	精巣摘除術
7	安間ら	1980	45	右	—	精巣上体炎	精巣摘除術
8	安間ら	1980	25	右	—	—	—
9	安間ら	1980	32	右	—	—	—
10	島谷ら	1981	27	左	—	精巣腫瘍	精巣摘除術
11	松下ら	1981	39	右	小指頭大	精巣上体炎	精巣摘除術
12	丸茂ら	1985	30	右	小指頭大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
13	和田ら	1985	55	左	小手拳大	陰嚢内腫	腫瘍摘出術
14	水町ら	1985	—	—	—	精巣腫瘍	—
15	西山ら	1986	39	右	小指頭大	精巣腫瘍	精巣摘除術
16	佐藤ら	1987	26	左	小鶏卵大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
17	濱田ら	1988	34	左	小豆大	精巣腫瘍	精巣摘除術
18	濱田ら	1988	48	左	小豆大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
19	長本ら	1989	45	右	小豆大	精巣垂捻転	精巣摘除術
20	青木ら	1989	40	左	小指頭大	陰嚢内腫瘍	腫瘍摘出術
21	大田ら	1990	35	左	小指頭大	精巣上体腫瘍	腫瘍摘出術
22	有角ら	1991	38	左	小指頭大	精巣上体炎	精巣摘除術
23	福田ら	1991	58	左	小指頭大	精巣上体腫瘍	精巣摘除術
24	永井ら	1995	68	左	—	—	精巣摘除術
25	田中ら	1997	29	左	示指頭大	—	腫瘍摘出術
26	蒲池ら	1997	22	左	拇指頭大	精巣腫瘍	—
27	藤本ら	2000	45	右	小指頭大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
28	木村ら	2001	63	左	小指頭大	—	精巣摘除術
29	尾山ら	2001	54	右	米粒大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
30	田尻ら	2003	32	右	小鶏卵大	—	精巣摘除術
31	山下ら	2003	56	右	小豆大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
32	徳川ら	2004	46	右	小豆大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術
33	林ら	2004	46	左	小指頭大	精巣上体腫瘍	腫瘍摘出術
34	角山ら	2006	25	右	小指頭大	—	腫瘍摘出術
35	櫻井ら	2007	38	左	小指頭大	精巣腫瘍	精巣摘除術
36	自験例	2007	44	左	小指頭大	精巣腫瘍	腫瘍摘出術

腫瘍であるとされている⁶⁾。

術前診断としては、精巣腫瘍が最も多く14例(39%)、その他精巣上体腫瘍、精巣上体炎など様々であった。精巣に発生する良性腫瘍は全精巣腫瘍の3.5%程度と稀であり⁷⁾、Makarainen ら⁸⁾は精巣良性腫瘍を疑う条件として、経過が長く、腫瘍マーカーが正常で、超音波検査で腫瘍が精巣の辺縁に見られることをあげている。本症以外の精巣良性腫瘍としては類表皮嚢胞、類皮嚢胞、セルトリ細胞腫、線維腫、平滑筋腫などがある。なかでも類表皮嚢胞は比較的頻度が高く⁹⁾、本症との鑑別疾患として念頭におく必要があると考える。類表皮嚢胞は10代から20代に多く見られ、3 cm 以下のものが6割以上を占める¹⁰⁾。超音波検査では腫瘍は境界明瞭で、内部は hypoechoic pattern であり、MRI では T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号を呈し、造影効果は認めないとされる^{11, 12)}。一方、精巣 adenomatoid tumor は超音波検査で境界明瞭であるが、内部 pattern は一定ではなく^{4, 13)}、MRI では自験例と同様に T2 強調画像で低信号、T1 ガドリニウム造影で血流の乏しい腫瘍として描出される¹⁴⁾。しかし、自験例も術前に類表皮嚢胞を疑った様に、実際には両者の鑑別は困難と考える。だがこれらの画像所見は典型的な悪性腫瘍のものと異なるため、超音波検査および MRI にて境界明瞭な造影効果の乏しい腫瘍を精巣の辺縁に認める場合は、良性腫瘍の可能性も考慮すべきと考える。

精巣 adenomatoid tumor の治療として、精巣摘除術が15例(40.5%)、腫瘍摘出術が15例(40.5%)に施行され、不明が7例(19.0%)であった。Adenomatoid tumor が良性腫瘍であることを考慮すると、精巣温存手術が望ましい。本邦では1985年に丸茂ら¹⁵⁾が精巣 adenomatoid tumor に対し FSE を用いて精巣温存を行っており、その後精巣温存が試みられる症例は増加している。自験例はすでに5人の子供がおり育児希望はなかったが、良性腫瘍の可能性が高かったことや cosmetic な理由から FSE を用いた精巣温存手術を選択した。結果として FSE では悪性所見を認めず、精巣を温存することができた。精巣腫瘍の悪性と良性の鑑別は、注意深く計画された FSE で100%可能であるといわれており¹⁶⁾、その診断は十分信頼できるものと思われる。

結 語

精巣 adenomatoid tumor の1例を経験したため、若干の文献的考察を加え報告した。精巣に発生する良性、悪性腫瘍の術前鑑別は困難なことが多く、現在のところ確定診断のためには観血的手段が望ましい。よって触診、各種腫瘍マーカーおよび画像所見から精巣良性腫瘍が疑われる場合は、本症も鑑別におき、可

能であれば術中迅速病理診断を行い慎重に術式を選択することが重要と考える。

文 献

- 1) 藤本雅哉, 難波行臣, 古賀 実, ほか: 精巣白膜に発生した Adenomatoid tumor の1例. 泌尿紀要 **46**: 345-347, 2000
- 2) Golden A and Ash JE: Adenomatoid tumors of the genital tract. Am J Pathol **21**: 63-79, 1945
- 3) 本城 充, 井上彦八郎, 野々村祝夫, ほか: 副辜丸アデノマトイド腫瘍の1例. 泌尿紀要 **34**: 1829-1831, 1988
- 4) 尾山博則, 小川正至, 御厨祐治, ほか: 精巣白膜に発生した Adenomatoid tumor の1例. 泌尿紀要 **47**: 661-663, 2001
- 5) 中野康治, 藤井昭男, 守殿貞夫, ほか: 副辜丸 Papillary cystadenoma の1例. 泌尿紀要 **28**: 1285-1289, 1982
- 6) 長本章裕, 高橋俊博, 三浦 猛, ほか: 辜丸アデノマトイド腫瘍の1例. 西日泌尿 **52**: 860-863, 1990
- 7) Turner WR Jr, Derrick FC, Sanders DP III, et al.: Benign lesions of the tunica albuginea. J Urol **117**: 602-604, 1977
- 8) Makarainen HP, Tammela TLJ, Karyyunen TJ, et al.: Intrascrotal adenomatoid tumors and their ultrasound findings. J Clin Ultrasound **21**: 33-37, 1993
- 9) Loya AG, Said JW and Grant EG: Epidermoid cyst of the testis: radiologic-pathologic correlation. Radiographic **24**: S243-246, 2004
- 10) 山本圭介, 高田 剛, 桃原実大, ほか: 超音波検査にて術前診断が困難であった精巣類表皮嚢胞の1例. 泌尿紀要 **49**: 213-215, 2003
- 11) 大口尚基, 川村 博, 大原 孝, ほか: 精巣類表皮嚢胞の1例: MRI 所見について. 泌尿紀要 **44**: 747-749, 1998
- 12) Brenner JS, Cumming WA and Ros PR: Testicular epidermoid cyst: sonographic and MR findings. Am J Roentgenol **52**: 1344, 1989
- 13) Sato K, Takeshima H, Ishikawa S, et al.: Adenomatoid tumor of the tunica albuginea. Nishinippon J Urol **49**: 843-845, 1987
- 14) Patel MD and Silva AC: MRI of an adenomatoid tumor of the tunica albuginea. AJR **182**: 415-417, 2004
- 15) 丸茂 健, 実川正道, 田崎 寛, ほか: 辜丸に発生した Adenomatoid tumor の1例. 日泌尿会誌 **76**: 1425-1427, 1985
- 16) Elert A, Olbert P, Hegele A, et al.: Accuracy of frozen section examination of testicular tumors of uncertain origin. Eur Urol **41**: 290-293, 2005

(Received on December 6, 2007)

(Accepted on December 27, 2007)