

精巣鞘膜由来悪性中皮腫の1例

大島 純平, 井上 均, 福田 聡子

西村 健作, 原 恒男

市立池田病院泌尿器科

MALIGNANT MESOTHELIOMA OF THE TUNICA
VAGINALIS TESTIS: A CASE REPORT

Junpei OSHIMA, Hitoshi INOUE, Satoko FUKUDA,

Kensaku NISHIMURA and Tsuneo HARA

The Departments of Urology, Ikeda Municipal Hospital

A 56-year-old man presented with a painless swelling of the left scrotum. Cytologic examination of blood stained hydrocele fluid suggested malignancy. Left high orchiectomy was performed under the suspicion of malignant tumor of the tunica vaginalis testis. The final pathologic report revealed malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. There is no evidence of recurrence after 114 months follow-up. It is important to perform en bloc resection for this disease to prevent recurrence.

(Hinyokika Kiyo 65 : 215-218, 2019 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_65_6_215)

Key words : Malignant mesothelioma, Tunica vaginalis testis

緒 言

悪性中皮腫は胸膜や腹膜から発生し、精巣鞘膜から発生することは稀である。今回われわれは陰嚢水腫の穿刺液で悪性を疑い、手術を施行した精巣鞘膜悪性中皮腫の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者 : 56歳, 男性

主 訴 : 左陰嚢内容の無痛性腫大

既往歴 : 高血圧, アスベスト曝露歴なし

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2009年1月左陰嚢内容の無痛性腫大を自覚, 増大したため当科を受診した。

初診時現症 : 左陰嚢腫大 (鶏卵大), 牽引痛なし, 表在リンパ節を触知しなかった。

一般血液検査, 生化学検査で異常を認めなかった。

画像所見 : 超音波検査では陰嚢水腫と矛盾しない所見であった。

陰嚢穿刺を行ったところ, 血性の内容液 100 ml を回収した。細胞診検査では一部に核不整を有する細胞を認め, 擬陽性であった (Fig. 1)。

細胞診の結果から, 悪性腫瘍の可能性を考慮し腫瘍マーカーを測定した : LDH 187 IU/L, AFP 14.2 ng/ml, HCG- β subunit 0.1 ng/ml 以下, CEA 0.82 ng/ml, CA19-9 21.70 ng/ml

すべて正常範囲であった。

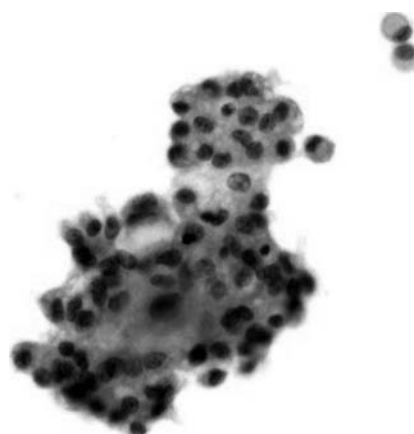


Fig. 1. Cytology of hydrocele fluid suggested malignancy.

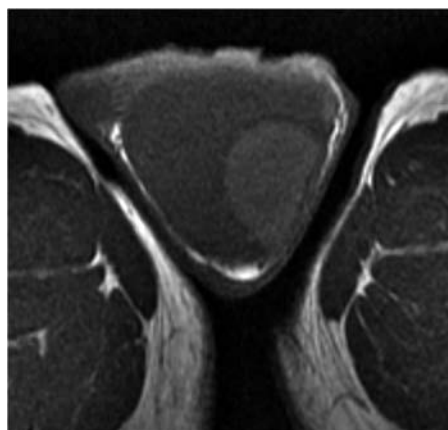
陰嚢穿刺から35日後, 左陰嚢内容の再腫大を認め, 再度穿刺を行い内容液 90 ml を回収した。内容液は黄色澄明であったが, 細胞診は擬陽性を反復した。

骨盤部 MRI : 陰嚢内は T1 強調像で低信号, T2 強調像で高信号を示し, 陰嚢水腫の所見であった (Fig. 2)。

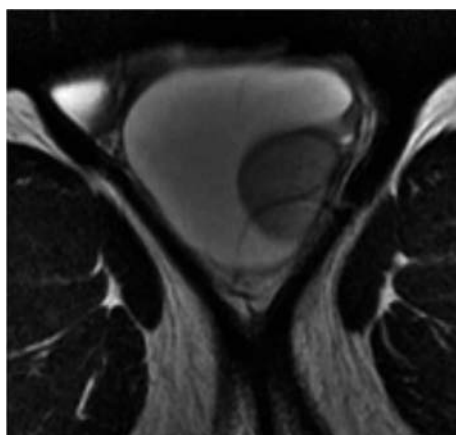
穿刺液の細胞診結果から, 精巣鞘膜由来の悪性腫瘍, 悪性中皮腫を疑い左高位精巣摘除術を行う方針とした。

手術所見 : 左精巣を鞘膜に包まれた形で en bloc に切除した。

肉眼所見 : 黄色澄明な内容液 60 ml を含んでいた。精巣鞘膜を開き観察したが, 肉眼的には水腫壁に明らかな腫瘍や肥厚を認めず, 精巣, 精巣上体に腫瘍を示



A



B

Fig. 2. Plain MRI (A: T1-weighted, B: T2-weighted) revealed left hydrocele testis.



Fig. 3. Gross pathology: there is no visible nodule in the tunica vaginalis testis.

唆する所見を認めなかった (Fig. 3).

病理所見：精巣鞘膜面に細かな nodule がびまん性に散見され、うち1カ所は明らかな乳頭状構造を示していた。この部分には、異型性のある中皮細胞が配列しており、また mitosis も認めた (Fig. 4)。その他の nodule にも異型性のある中皮細胞の集簇を認めた。免疫染色では calretinin 陽性、cytokeratin 陽性、CK5/6 陽性、EMA 陽性、CEA 陰性であった。以上から悪性中皮腫と診断した。精巣や精巣上体、精索には浸潤

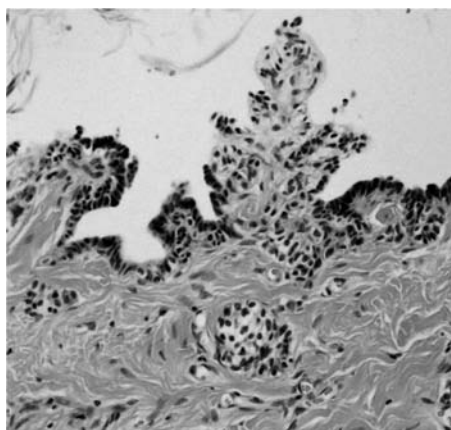


Fig. 4. Histological examination showed atypical mesothelial cells.

を認めなかった。

術後114カ月経過した現在、明らかな再発転移を認めていない。

考 察

悪性中皮腫は、中皮細胞を有する組織から発生する悪性腫瘍であり、主に胸膜、心嚢膜、腹膜から発生する。精巣鞘膜は胎生期における精巣の陰嚢内への下降に伴って形成される鞘膜であり、その表面は他の体腔と同じく中皮細胞で被われている。精巣鞘膜から発生する悪性中皮腫はきわめて稀であり、村井らによって報告された中皮腫1,786例の発生部位の分布は、胸膜1,213例 (68.0%) 腹膜431例 (24.1%) 心膜108例 (6.0%) で、精巣鞘膜は6例 (0.3%) であった¹⁾。

精巣鞘膜由来の悪性中皮腫の本邦報告例を集計した。臨床経過を確認可能な症例は自験例を含め24例である (Table 1)。発症時年齢の中央値は54.5歳で、主訴は陰嚢腫大が18例で最も多く、次いで陰嚢内腫瘍4例であった。アスベストの曝露歴は記載のあった21例中3例に認めた。初期治療後再発は24例中7例にみられた。再発部位は所属リンパ節転移が3例、局所再発が2例、胸膜転移1例、肝転移が1例であった。

アスベストの曝露歴について、悪性中皮腫患者全体では76.8%に曝露歴があるとされる²⁾一方、精巣鞘膜では34.2%にみられる³⁾が、その経路は不明である。

術前診断はきわめて困難である。本邦報告例では術前診断の記載を24例に認め、陰嚢内腫瘍性疾患疑い15例、陰嚢水腫6例、他1例で、自験例のように治療前に悪性中皮腫を疑った症例はなかった。陰嚢水腫を合併し、陰嚢穿刺を行った7例のうち3例に血性内容液を認めている。穿刺液内容液の細胞診については、必ずしも推奨する検査ではないとする報告もあるが⁴⁾、細胞診の悪性所見が再発と関連する可能性を示唆する報告もある⁵⁾。画像検査では超音波検査やMRIでの精巣鞘膜の乳頭状増殖像や壁肥厚像が有用とされるこ

Table 1. Twenty four cases of malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis reported in the Japanese literature

ID	年齢	アスベスト曝露	主訴	臨床診断	術前水腫穿刺	初期治療	転移	予後	報告者	報告年
1	35	なし	陰嚢内容腫大	精巣腫瘍	不明	高位精巣摘除	なし	生存 (1.5M)	Einoto	1977
2	27	なし	陰嚢内容腫大	精巣腫瘍	不明	高位精巣摘除	なし	生存 (12M)	水尾	1981
3	34	なし	陰嚢内腫瘍	精液瘤	不明	高位精巣摘除	なし	生存 (6M)	Yamanishi	1984
4	53	なし	陰嚢内腫瘍	陰嚢内腫瘍	なし	高位精巣摘除	リンパ節皮下, 骨	死亡 (15M)	奥谷	1988
5	74	不明	陰嚢内容腫大	陰嚢水腫	あり, 所見なし	水腫手術	なし	生存 (15M)	後藤	1989
6	32	なし	陰嚢内腫瘍	精巣腫瘍	不明	高位精巣摘除	なし	生存 (8M)	Kamiya	1990
7	20	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢水腫	あり, 黄色細胞診Ⅱ	陰嚢水腫手術	なし	生存 (4M)	山城	1991
8	83	不明	陰嚢痛	不明	なし	精巣上体切除	記載なし	不明	須山	1993
9	67	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢内腫瘍	不明	高位精巣摘除	傍大動脈 LN 肺	死亡 (8M)	Umekawa	1995
10	18	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢内腫瘍	黄色澄明細胞診なし	腫瘍切除	なし	生存 (15M)	町田	1997
11	30	なし	陰嚢内容腫大	精巣腫瘍	なし	高位精巣摘除	なし	生存 (20M)	堤	2000
12	81	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢水腫	なし	陰嚢水腫根治術	傍大動脈 LN 腰椎	死亡 (12M)	Abe	2002
13	64	不明	陰嚢内容腫大	陰嚢水腫	あり, 所見なし	陰嚢水腫根治術	なし	生存 (8M)	島田	2003
14	35	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢内腫瘍	なし	腫瘍切除	なし	生存 (3M)	黒川	2004
15	48	なし	陰嚢内容腫大	精巣腫瘍	なし	高位精巣摘除	なし	生存 (72M)	澤田	2004
16	81	なし	陰嚢内容腫大, 疼痛	陰嚢内腫瘍	褐色液	高位精巣摘除	右胸膜	死亡 (19M)	瀬尾	2005
17	67	なし	陰嚢内容腫大	精巣腫瘍	なし	腫瘍切除	肝転移	死亡 (26M)	Ikegami	2008
18	42	あり	陰嚢内腫瘍	会陰部腫瘍	なし	腫瘍切除	局所再発	死亡 (6M)	鷲野	2008
19	70	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢内腫瘍	なし	高位精巣摘除	なし	生存 (3M)	松崎	2008
20	60	あり	鼠径部腫脹	陰嚢内腫瘍	不明	高位精巣摘除	両側鼠経	不明	島本	2011
21	52	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢水腫	なし	陰嚢水腫根治術	転移なし	生存 (12M)	加藤	2012
22	62	あり	陰嚢内容腫大	精巣腫瘍	なし	高位精巣摘除	断端陽性	生存 (24M)	鄭	2013
23	93	なし	陰嚢内容腫大	陰嚢水腫	血性, Class IIIA	陰嚢水腫根治術	なし	生存 (6M)	金子	2016
24	56	なし	陰嚢内容腫大	悪性中皮腫	血性, 擬陽性	高位精巣摘除	なし	生存 (114M)	自験例	2019

ともあるが、検出されることは稀である⁴⁾。自験例では画像上は積極的に癌を疑う所見を認めなかったが、穿刺液が血性であったこと、細胞診結果が擬陽性であったこと、陰嚢水腫が急速に再増大したことより悪性腫瘍、しかも悪性中皮腫を第一に疑い精巣を水腫ごと en bloc に切除したことが根治につながった。

陰嚢水腫に対する穿刺において、穿刺液の血性を確認した場合や細胞診で悪性を疑う所見を認めた場合は、本疾患を念頭に入れた治療法を検討すべきと考ええる。一方、陰嚢水腫の穿刺細胞診が2回陰性であった後に陰嚢水腫根治術を行い、2カ月後に2cm大の陰嚢内腫瘍を認め、精巣摘除術を行った結果精巣鞘膜悪性中皮腫と判明した山城らの報告例⁶⁾もあり、術前診断は容易ではない。術中に診断された症例では、①内容液が血性であった、②精巣鞘膜に隆起あるいは線維性の肥厚を認めたと報告されている³⁾。

治療は外科手術が有効と考えられており、本邦報告26例の全例で外科的切除が行われていた。精巣鞘膜を一塊に切除する根治的切除を行うことが重要であり、精巣鞘膜を部分切除するにとどまった症例では高位精巣摘除術を行った症例の3倍の局所再発率を認めるとの報告があり⁷⁾、不完全な切除による腫瘍病変の残存や術中の腫瘍細胞の曝露や播種がリスクと考えられている。本疾患の可能性を念頭に手術を行う場合、精巣鞘膜の内容液を飛散させないように精巣摘除を行う必要がある。外科手術を行う前に本疾患を疑うことが重要であり、自験例では左精巣を鞘膜に包まれた状態で高位切除したことが術後114カ月の無再発生存につながったものと考えられる。

結 語

精巣鞘膜に発生した悪性中皮腫の1例を経験したので文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Murai Y: Malignant mesothelioma in Japan: analysis of registered autopsy cases. Arch Environ Health **56**: 84-88, 2001
- 2) Gemba K, Fujimoto N, Kato K, et al.: National survey of malignant mesothelioma and asbestos exposure in Japan. Cancer Sci **103**: 483-490, 2012
- 3) Plas E, Riedl CR and Pflüger H: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: review of the literature and assessment of prognostic parameters. Cancer **83**: 2437-2446, 1998
- 4) 鄭 裕元, 倉橋俊文, 丸山 聡, ほか: 精巣鞘膜に発生した悪性中皮腫の1例. 泌尿紀要 **59**: 603-606, 2013
- 5) 金子正大, 南川哲寛, 中内博夫, ほか: 精巣鞘膜悪性中皮腫の1例. 日泌尿会誌 **107**: 44-47, 2016
- 6) 山城勝重, 野島孝之, 藤田昌宏, ほか: 精巣鞘膜原発の低悪性度中皮腫: 穿刺吸引細胞診の1例. 日臨細胞会誌 **30**: 1159-1163, 1991
- 7) Chen KT, Arhelger RB, Flam MS, et al.: Malignant mesothelioma of tunica vaginalis testis. Urology **20**: 316-319, 1982

(Received on December 6, 2018)
(Accepted on February 20, 2019)