

陰嚢内高分化炎症性脂肪肉腫の1例

澤崎 晴武¹, 中村英二郎¹, 星 昭夫¹, 西澤 恒二¹
 吉村 耕治¹, 高橋 毅¹, 清川 岳彦¹, 西山 博之¹
 伊藤 哲之¹, 山本 新吾¹, 賀本 敏行¹, 小川 修¹
 吉澤 明彦², 小谷 泰一², 真鍋 俊明²

¹京都大学医学部泌尿器科学教室, ²同病理部

WELL-DIFFERENTIATED INFLAMMATORY LIPOSARCOMA OCCURRING IN THE SCROTUM: A CASE REPORT

Harutake SAWAZAKI¹, Eijiro NAKAMURA¹, Akio HOSHI¹, Koji NISHIZAWA¹,
 Koji YOSHIMURA¹, Takeshi TAKAHASHI¹, Takehiko SEGAWA¹, Hiroyuki NISHIYAMA¹,
 Noriyuki ITO¹, Shingo YAMAMOTO¹, Toshiyuki KAMOTO¹ and Osamu OGAWA¹,
 Akihiko YOSHIZAWA², Hirokazu KOTANI², Toshiaki MANABE²

¹The Department of Urology, Kyoto University Graduate School of Medicine

²The Department of Pathology, Kyoto University Graduate School of Medicine

Well-differentiated inflammatory liposarcoma is an unusual variant of liposarcoma, accounting for only about 2% of all liposarcomas. We report a case occurring in a 68-year-old male. An elastic soft mass, apart from the testis, was palpated in the right scrotum. Magnetic resonance imaging showed a 4 cm mass along the right spermatic cord. High orchiectomy was performed. Histologically, the mass was composed of lymphocytic aggregates, and paucicellular stroma with multinucleated cells. The adjacent lipoma-like lesion was clearly defined, and the mass was pathologically diagnosed as well-differentiated inflammatory liposarcoma.

(Hinyokika Kyo 52 : 961-963, 2006)

Key word : Well-differentiated inflammatory liposarcoma

緒 言

脂肪肉腫は、後腹膜や下肢に発生することが多く、陰嚢内に発生することは比較的稀（4～7%）である。今回、われわれは陰嚢内に発生した高分化炎症性脂肪肉腫という非常に稀な1例を経験したので若干の文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：60歳代、男性

主訴：右陰嚢内無痛性腫瘍

既往歴：高血圧、高脂血症。虚血性心疾患（56歳）

家族歴：特記事項なし

現病歴：40歳代後半より、右陰嚢内に腫瘍を触知するようになる。2～3カ月前より腫瘍の増大傾向を認めたため、当科受診。精査加療目的にて入院となる。

現症：右陰嚢内に精巣とは別に径4cm大、弾性軟の腫瘍を触知した。

検査成績：血液一般検査では、WBC 6,100, Hb 15.7と明らかな異常なく、生化学検査、腫瘍マーカーも、CRP 0.1 mg/dl, LDH 165 IU/L, AFP 3.2 ng/

ml, HCG- β 0.1以下 ng/ml とすべて正常範囲内であった。尿検査も異常所見を認めなかった。

画像所見：エコー上、腫瘍は hypoechoic で、ドプラーエコーにて腫瘍内に血流を認めた。MRI では、右精索に沿って腫瘍があり、T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号を呈した (Fig. 1)。また、腫瘍尾側に



Fig. 1. Magnetic resonance imaging shows a 4 cm mass along right spermatic cord (arrow) and much fatty lesion under the mass (arrow head).

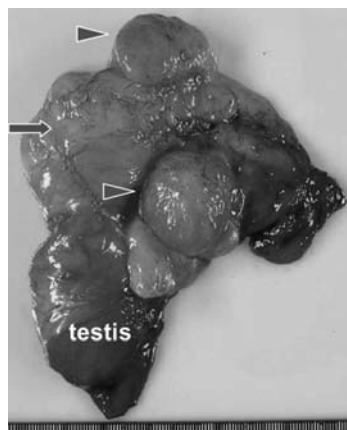


Fig. 2. Gross appearance of the mass (arrow), fatty lesion (arrow heads) and testis.

も脂肪の信号を示す部分があり、明らかに対側に比べて volume が多かった。鑑別疾患としては平滑筋肉腫、横紋筋肉腫、悪性線維性組織球腫、悪性リンパ腫などが考えられたが、MRI 所見上、脂肪の信号を示す部分は高分化型の脂肪肉腫を、腫瘍は細胞成分に富む腫瘍が2次的に発生したものと推測された。CT 上、明らかな遠隔転移を認めなかった。

陰嚢内脂肪肉腫の診断にて、2004年7月、高位精巣摘除術に準じて手術を施行した。術中所見は、腫瘍周囲の癒着を認めず、腫瘍、脂肪性病変および精巣を一塊に摘除しえた (Fig. 2)。

病理組織所見：脂肪性病変は成熟した脂肪成分より成り、一部に軽度の核腫大を認めた (Fig. 3a)。腫瘍では、多核の核と細胞内空胞を有する大型間葉系細胞が散見された。また、形質細胞・リンパ球による慢性炎症細胞浸潤が目立ち、被膜様構造外の脂肪成分にも及んでいた (Fig. 3b)。免疫染色では、大型細胞は Desmin, α -SMA は陰性、S-100, CD34 は一部で弱陽性像を認めた。以上の所見から、高分化炎症性脂肪肉

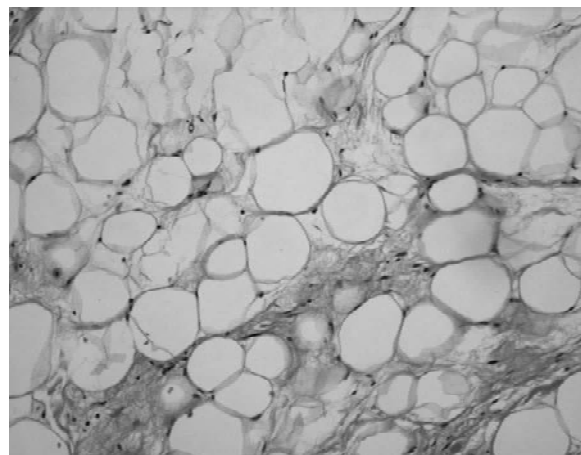


Fig. 3a. Well-differentiated liposarcoma, lipoma-like type, showing mature-appearing adipose tissue with hyperchromatic, irregular, enlarged nuclei.

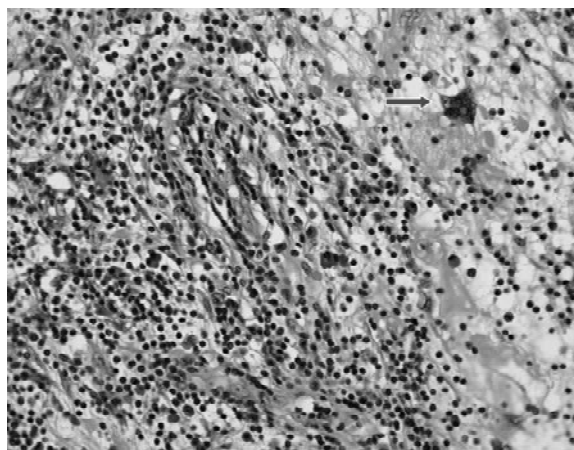


Fig. 3b. Well-differentiated liposarcoma, sclerosing type, showing multinucleated cells (arrow) and paucicellular lesion and lymphoplasmacytic infiltration.

腫と診断した (脂肪性病変：lipoma-like type, 腫瘍：sclerosing type)。精巣実質には浸潤増殖を認めなかった。術後経過順調であり、1年4カ月後の段階まででは再発を認めていない。

考 察

脂肪肉腫は全悪性腫瘍の7.2%を占め、後腹膜、下肢に多く発生し、陰嚢内発生は4~7%で比較的稀であるとされる。時折、原発性後腹膜脂肪肉腫が、陰嚢内に進展するとの場合も見られる¹⁾。Montgomery ら¹⁾の報告によると、陰嚢内脂肪肉腫の発生母地としては精索 (76%)、精巣白膜 (20%)、精巣上体 (4%) の順に多く、治療は全例高位精巣摘除術が施行されていた。組織型により3群に分類され、発生頻度としては高分化型 (63%)、脱分化型 (33%)、粘液/円形細胞型 (3%) の順に多い。高分化型としては、さらに lipoma-like type (成熟した脂肪組織が増殖したもので、核異型が強く N/C 比も高く、脂肪細胞の大きさが様々であるもの) と sclerosing type (線維増殖を背景に異型な核と細胞内空胞を有するもの) に分けられ²⁾、それぞれ単独で見られる場合と並存している場合がある。高分化炎症性脂肪肉腫は脂肪肉腫の約2%を占め、大部分は後腹膜に発生する。発生の男女比に差はない³⁾。精索を含む傍精巣領域に発生した高分化型脂肪肉腫では、約20%でリンパ球を中心とする炎症細胞成分を伴っていた¹⁾。

陰嚢内高分化炎症性脂肪肉腫は、われわれの調べた限りでは^{1,3,4)}、文献上6例の報告があり自験例は7例目に相当する (Table 1)。無痛性陰嚢腫大や腫瘍触知を主訴とすることが多い。発症年齢は49~83歳 (平均68歳) で、腫瘍の大きさは3~15 cm (平均7.6 cm)、治療として全例外科的切除されている。術後経過としては6例中3例に局所再発が認められている。

Table 1. Case of well-differentiated inflammatory liposarcoma occurred in the scrotum

Case No.	Author	Age (yr)	Size (cm)	Treatment	Recurrence	Follow-up
1	Kraus	74	3	excision	2	12 y
2	Lauchkar	83	15	excision	1	18 m
3	Montgomery	66	7	excision	0	28 m
4	Montgomery	59	5	excision	1	13 y
5	Montgomery	49	9.5	excision	unknown	unknown
6	Montgomery	78	unknown	excision	unknown	unknown
7	present case	68	6	excision	0	16 m

現在まで転移をきたしたとの報告はなく、予後は比較的良好と考えられる¹⁾。確定診断は病理組織診断により行われ、その特徴としては、①リンパ球・形質細胞を中心とした慢性炎症細胞浸潤、②細胞内空胞と多核の核を有する細胞を伴う線維性間質、③高分化脂肪肉腫と診断できる組織領域を有することの3点である。上記所見が診断に大きな役割を果たし、免疫組織染色は診断の補助として施行される。成熟した脂肪性病変 (lipoma-like type) は、S100 陽性となる。また、細胞内空胞と多核の核を有する大型間葉系細胞 (scrolosing type) は、S100, CD15, CD30, cytokeratin には反応しない⁵⁾。鑑別疾患としてはホジキン病、非ホジキン病、炎症性偽腫瘍、Castleman 病、形質細胞腫、転移性大細胞癌などがある⁶⁾。ホジキン病や転移性大細胞癌でも巨細胞が認められるが、ホジキン病では CD30, CD15 で陽性となることで、転移性大細胞癌では cytokeratin (上皮性マーカー) が陽性になることで判別される。非ホジキン病、炎症性偽腫瘍、Castleman 病、形質細胞腫ではリンパ球や形質細胞浸潤を認める点で共通しているが、非ホジキン病、炎症性偽腫瘍や Castleman 病では N/C 比の高い大型間葉系細胞が存在しないことや脂肪が混在しないこと、形質細胞腫は monoclonal な染色パターンで陽性になることで鑑別される⁶⁾。炎症成分の発生原因については、Hisaoka ら⁷⁾は類白血病反応を示した脱分化型脂肪肉腫の1例を報告し、腫瘍由来の GCSF や IL-6 が炎症の原因であると指摘している。本症例の場合、リンパ球や形質細胞を中心とした慢性炎症であり炎症の原因に関して病理医と検討を行ったが原因に相当するものは不明であった。

自験例は、右陰嚢内無痛性腫瘤を主訴とし、MRI にて陰嚢内脂肪肉腫を疑われ、外科的切除を施行した。病理組織学的所見では、lipoma-like type と scrolosing type が並存し、炎症性成分は主に scrolosing type に認められた。発生部位としては精巣実質に浸潤を認めず、精索由来と考えられた。報告例の6例中3例 (50%) に局所再発が認められており、手術の際に周囲組織を含め脂肪肉腫を残さず根治的に摘除することが治療として最も大切であると考えられる³⁾。今

後も長期にわたり術後経過観察を施行していく予定である。

結 語

今回、われわれは陰嚢内高分化炎症性脂肪肉腫の1例を経験した。非常に稀な疾患であり、今後局所再発に注意し長期にわたり経過観察していく予定である。

本論文の要旨は、第191回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Montgomery E and Fisher C: Paratesticular liposarcoma: a clinicopathologic Study. *Am J Surg Pathol* **27**: 40-47, 2003
- 2) Enzinger FM and Winslow DJ: Liposarcoma: a study of 103 cases. *Virchows Arch Pathol Anat Physiol Klin Med* **335**: 367-388, 1962
- 3) Kraus MD, Guillou L and Fletcher CDM: Well-differentiated inflammatory liposarcoma: an uncommon and easily overlooked variant of a common sarcoma. *Am J Surg Pathol* **21**: 518-527, 1997
- 4) Lachkar A, Sibert L, Gobet F, et al.: Unusual tumor: liposarcoma of the spermatic cord. *Prog Urol* **10**: 1228-1231, 2000
- 5) Argani P, Facchetti F, Inghirami G, et al.: Lymphocyte-rich well-differentiated inflammatory liposarcoma: report of nine cases. *Am J Surg Pathol* **21**: 884-895, 1997
- 6) Wu HH, Harshbarger KE and McCandless DG: Fine-needle aspiration cytology of well-differentiated inflammatory liposarcoma: a case report with histologic follow-up. *Diagn Cytopathol* **20**: 229-232, 1999
- 7) Hisaoka M, Tsuji S, Hashimoto H, et al.: Dedifferentiated liposarcoma with an inflammatory malignant fibrous histiocytoma-like component presenting a leukemoid reaction. *Pathol Int* **47**: 642-646, 1997

(Received on February 1, 2006)
(Accepted on July 19, 2006)