

陰茎 Sarcomatoid carcinoma の 1 例

鰐渕 敦¹, 田口 圭介¹, 池端 良紀¹
 栗村雄一郎¹, 桒山 佳樹², 外丸 詩野³

¹王子総合病院泌尿器科, ²札幌医科大学泌尿器科

³北海道大学大学院医学研究科分子病理学分野

A CASE OF SARCOMATOID CARCINOMA OF THE PENIS

Atsushi WANIFUCHI¹, Keisuke TAGUCHI¹, Yoshinori IKEHATA¹,
 Yuichiro KURIMURA¹, Yoshiki HIYAMA² and Utano TOMARU³

¹The Department of Urology, Oji General Hospital

²The Department of Urologic Surgery and Andrology, Sapporo Medical University School of Medicine

³The Department of Pathology, Hokkaido University Graduate School of Medicine

A 75-year-old man visited our hospital complaining of a foul smelling, painful swelling of the glans of the penis. Physical examination showed a true phimosis and a huge solid mass on the glans under the foreskin. After postectomy and penile tumor biopsy, we performed partial penectomy. Histologically, the tumor was composed of atypical spindle cells arranged in an epithelioid pattern and stained positive for both epithelial and mesenchymal markers. Therefore we diagnosed the tumor as sarcomatoid carcinoma of the penis. One month after surgery, advanced gastric cancer was discovered. Thereafter, cancer rapidly spread throughout the whole body, and he died six months postoperatively.

(Hinyokika Kiyo 61 : 249-252, 2015)

Key words : Sarcomatoid carcinoma, Penis

緒 言

Sarcomatoid carcinoma は上皮性腫瘍と間葉系腫瘍の性格を併せ持つ悪性度の高い稀な腫瘍である。陰茎発生例は特に少なく、調べた本邦報告例は4例にとどまる。今回、われわれは陰茎 sarcomatoid carcinoma 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 : 75歳, 男性

主 訴 : 陰茎亀頭部腫大

既往歴 : 66歳時脳梗塞

家族歴 : 特になし

喫煙歴 : 60本×40年間

現病歴 : 2012年1月頃から陰茎亀頭部の腫大を自覚した。その後も増大傾向が続いたため近医を受診。抗菌薬の投与を受けたが改善は認めず。同年4月24日当科初診となった。

初診時身体所見 : 陰茎は真性包茎で包皮下に硬く手拳大(約10cm)に腫大した亀頭を触知した。鼠径部に転移を疑うようなリンパ節の腫大は認めなかった。

初診時検査所見 : SCC 抗原 1.9 ng/ml (基準値 : 1.5 ng/ml 以下)と軽度上昇を認めた。また、亀頭先端の擦過細胞診の結果は class III であった。

画像検査 : MRI では T2 強調画像で包皮下に低信

号で内部不均一な多結節性腫瘍を認めた (Fig. 1)。海綿体や尿道への腫瘍浸潤は明らかではなかった。

入院後経過 : 2012年6月に背面切開術を施行。露出した亀頭の左側に長径9cmのポリープ様多結節性腫瘍を認めたため同時に生検も行った (Fig. 2)。検体には炎症や壊死組織が含まれており病理診断をする上で量的に不足していたが最終的に陰茎肉腫と診断された。転移検索目的にCTを施行したが転移を疑う所見は認めなかった。ただし胃部に比較的大きな腫瘍を認め原発性胃癌を疑った。同年7月に陰茎肉腫 (cT2aN0M0) の診断で陰茎部分切除術を施行した。

病理学的所見 : 高度な異型性を示す紡錘形細胞が束状・上皮様に配列し、腫瘍の一部は尿道海綿体へ浸潤していた。腫瘍から1cm離れた切除断端は陰性であった。免疫染色では vimentin や SMA などの間葉系マーカーの発現を認める一方、上皮性マーカーである EMA も陽性を示し最終的に sarcomatoid carcinoma (pT2N0M0) と診断された (Fig. 3)。

術後経過 : 陰茎部分切除術後の経過は良好であったが転移検索中に見つかった胃病変の精査目的で当院消化器内科へ転科。進行胃癌と診断され当科手術1カ月後の2012年8月に当院消化器外科で胃全摘除術を受けた。病理学的には pT4N2M0 の腺癌と診断され陰茎 sarcomatoid carcinoma との関連はなかった。胃癌手術の3カ月後には肺に多発転移を認めた。肺転移の原発

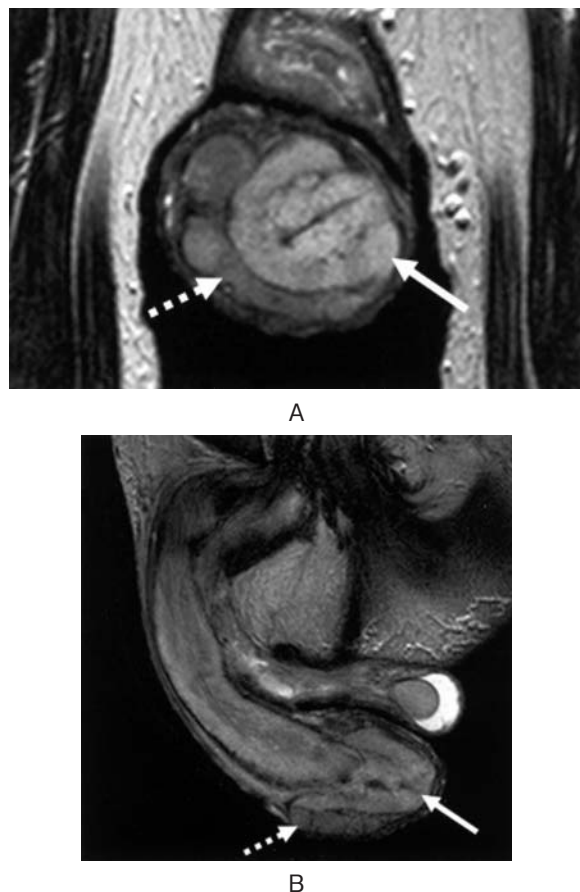
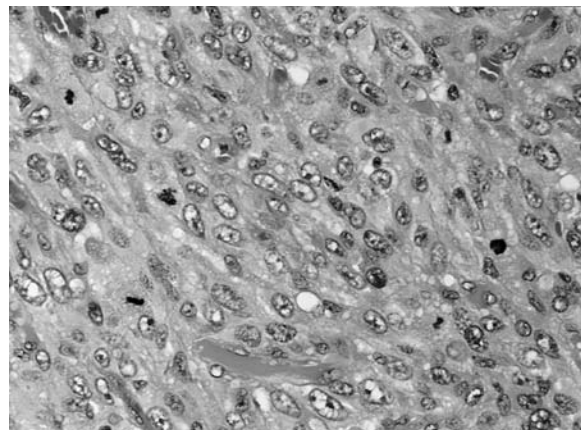


Fig. 1. MRI T2WI showed a low-intensity multinodular tumor around the glans with dotted arrow. Glans was marked with arrow. (A) Coronal image. (B) Sagittal image.

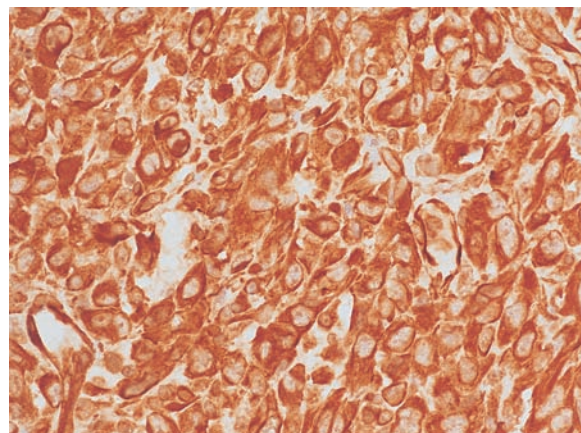


Fig. 2. Macroscopic finding showed a large polypoid tumor with ulcer on the surface of the glans of the penis.

巢については胃癌病変なのか陰茎 sarcomatoid carcinoma なのかが議論された。胃癌病変は脈管侵襲が高度で多発リンパ節転移や漿膜外浸潤などを認める進行胃癌 (pT4N2M0) で肺転移を起こす病期として矛盾しないと判断した。一方、陰茎 sarcomatoid carcinoma の場合、報告が少なく肺転移の頻度が未知であること



A



B

Fig. 3. (A) Microscopic findings of HE-stained specimen (×40). (B) Microscopic findings of vimentin (×40).

から最終的に胃癌からの肺転移を疑った。本来であれば組織確認をしたうえで肺転移治療を行うところであるが転移巣の進行が非常に急速であったため胃癌に準じた化学療法が施行された。しかし、その効果はなく2013年1月に永眠した。なお、術前高値を示していたSCC 抗原の術後検索は未施行であった。

考 察

陰茎癌は非常に稀な疾患で米国での発生率は10万人に0.81人¹⁾、本邦では10万人に0.2人²⁾と報告されている。陰茎悪性腫瘍の95%は扁平上皮癌 (以下 SCC) で WHO 組織型分類により usual type, papillary type, basaloid type, warty type, verrucous type, sarcomatoid type, mixed type の7つのサブタイプに分けられる³⁾。Sarcomatoid carcinoma は、陰茎癌全体の1~4%³⁻⁵⁾で本邦では4例⁶⁻⁹⁾の報告にとどまる (Table 1)。Sarcomatoid carcinoma の平均発生年齢は53.8~59歳と報告されており通常の扁平上皮癌に比べ比較的若年で発生しやすい^{4,5)}。

肉眼的特徴として大きなポリープ様腫瘍を形成し表面に潰瘍形成を伴うことが多く、組織学的には異型性

Table 1. A list of sarcomatoid carcinoma of the penis

報告者	報告年	年齢	腫瘍径	部位	SCC 抗原値	治療法	病期	観察期間	転帰
井内ら	1984	34	4 cm	亀頭縁-内板	不明	腫瘍切除	pTaN0M0	術後12カ月	癌なし生存
島本ら	2003	71	2.5 cm	亀頭	不明	陰茎部分切除術+鼠径リンパ節郭清	pT1N0M0	術後18カ月	癌なし生存
山崎ら	2011	55	9 cm	不明	<0.5 ng/ml	陰茎切断術	pT3N2M0	術後3カ月	癌死
瀬下ら	2013	61	8 cm	亀頭	1.2 ng/ml	陰茎全切断術	cT3N3M1	術後6カ月	癌死
自験例	2015	75	10 cm	亀頭	1.9 ng/ml	陰茎部分切断術	pT2N0M0	術後5カ月	他癌死

の強い紡錘形細胞と上皮性腫瘍成分が様々な割合で配列することが特徴とされる⁴⁾。また、免疫組織化学的染色も本疾患の診断には有用で vimentin などの間葉系抗体と EMA, AE1/3, 34βE12 などの上皮性抗体の両系統がともに陽性となる⁴⁾。Sarcomatoid carcinoma と同様に間葉系と上皮性の両腫瘍細胞を併せ持つ腫瘍として carcinosarcoma や spindle cell carcinoma の報告も少なくない。これらは多くの臓器で報告され、その存在を sarcomatoid carcinoma と同一視する向きがある。臨床的に sarcomatoid carcinoma と鑑別することは決して容易ではなく明確な定義も確立していないのが現状である。しかし、組織学的には carcinosarcoma の場合、上皮性の特徴を一切有しない間葉系成分と上皮性成分との間に形態的に明らかな境界を有すること、また筋・軟骨組織への heterologous differentiation を伴うことで区別することが可能とする報告もある^{4,10)}。その他の sarcomatoid carcinoma との鑑別疾患として angiosarcoma や leiomyosarcoma などの間葉系腫瘍が挙げられるが、これらは陰茎深部に発生することが多く、上皮性腫瘍成分を一切含まないことから鑑別は可能とされている⁴⁾。なお、本症例のように生検における検体量が十分得られなければ病理診断の正確性を欠く可能性があることも報告されている⁵⁾。

一般的に陰茎癌の発癌危険因子として、包茎・HPV 感染・喫煙などが確定している。しかし HPV DNA 検出率については、陰茎癌の組織型により異なり、warty type や basaloid type では高率に検出されることが報告されている¹¹⁾。一方、Sarcomatoid carcinoma においては HPV DNA 検出例も報告されているが、多くは検出されておらずその関連性は低いと考えられている⁴⁻⁵⁾。

Sarcomatoid carcinoma は稀な疾患であり、その治療は残念ながら確立していない。本疾患と診断された多くの症例で陰茎部分切除術や陰茎全切断術などの外科治療が行われている⁴⁻⁵⁾。しかしその成績は不良で Lont ら⁵⁾の報告では病理学的に T2 以上であった5例中4例が1年以内に癌死している。またリンパ節への転移が多く、初診時すでに89%の症例でリンパ節転移を有していたとする報告もある⁴⁾。自験例を含めた本邦での報告でも T3 であった2例は手術後6カ月以

内に癌死していた。一方、リンパ節転移は5例中2例の40%に認められていた。再発や転移に対する治療法も未確立であるが局所再発に対し cisplatin を含む全身化学療法で8年もの長期生存が得られた報告もされている⁵⁾。

結 語

Sarcomatoid carcinoma は悪性度のきわめて高い疾患である。この疾患を疑うような陰茎のポリープ様腫瘍を認めた場合には早急に検査・治療を考えるべきである。本疾患の報告例は少なく治療法も確立していない。今後、さらなる報告が待たれる。

文 献

- Hernandez BY, Barnholtz-Sloan J, German RR, et al.: Burden of invasive squamous cell carcinoma of the penis in the United States, 1998–2003. *Cancer* **15**: 2883–2891: 2008
- Marugame T, Katanoda K, Matsuda T, et al.: The Japan cancer surveillance report: incidence of childhood, bone, penis and testis cancers. *Jpn J Clin Oncol* **37**: 319–323: 2007
- Guimaraes GC, Cunha IW, Soares FA, et al.: Penile squamous cell carcinoma clinicopathological features, nodal metastasis and outcome in 333 cases. *J Urol* **182**: 528–534: 2009
- Velazquez EF, Melamed J, Barreto JE, et al.: Sarcomatoid carcinoma of the penis: a clinicopathologic study of 15 cases. *Am J Surg Pathol* **29**: 1152–1158: 2005
- Lont AP, Gallee MP, Snijders P, et al.: Sarcomatoid squamous cell carcinoma of the penis: a clinical and pathological study of 5 cases. *J Urol* **172**: 932–935: 2004
- 山崎一恭, 宮崎 淳, 菊池孝治: 急速に進行した陰茎 Sarcomatoid carcinoma の1例. *西日泌尿* **73**: 259–263, 2011
- 島本 力, 飯山達雄, 辛島 尚, ほか: 陰茎紡錘細胞癌の1例. *泌尿紀要* **51**: 775–778, 2005
- 井内康輝, 西田俊博, 仁科 肇, ほか: 陰茎の Spindle cell carcinoma の1例. *癌の臨* **30**: 99–104, 1984
- 瀬下博志, 銘苅晋吾, 矢野大輔, ほか: 骨形成変化を伴った肉腫様陰茎癌の1例. *西日泌尿* **75**:

- 617-622, 2013
- 10) Torenbeek R, Hermesen MA, Meijer GA, et al.: Analysis by comparative genomic hybridization of epithelial and spindle cell components in sarcomatoid carcinoma and carcinosarcoma: histogenetic aspects. *J Pathol* **189**: 338-343: 1999
- 11) Enrique P, Pascual A, Godínez JM, et al.: Human papillomavirus-associated penile sarcomatoid carcinoma. *J Cutan Pathol* **35**: 559-565: 2007
(Received on November 27, 2014)
(Accepted on February 10, 2015)