

陰囊平滑筋肉腫の1例

枝川 右^{1,3}, 稲元 輝生¹, 高原 健³, 上原 博史¹
古武 彌嗣³, 能見 勇人¹, 右梅 貴信¹, 水谷 陽一¹
辻 求², 東 治人¹

¹大阪医科大学泌尿生殖・発達医学講座泌尿器科学

²大阪医科大学大学院病理部, ³済生会中津病院

LEIOMYOSARCOMA OF THE SCROTUM

Yu EDAGAWA^{1,3}, Teruo INAMOTO¹, Kiyoshi TAKAHARA³, Hirofumi UEHARA¹,
Yatsugu KOTAKE³, Hayato NOMI¹, Takanobu UBAI¹, Yoichi MIZUTANI¹,
Motomu TSUJI² and Haruhito AZUMA¹

¹The Department of Urology, Osaka Medical College

²The Department of Pathology, Osaka Medical College

³The Department of Urology, Saiseikai Nakatsu Hospital

A 31-year-old man visited another hospital with a chief complaint of a solid mass in the left scrotum. The diagnosis was a skin cancer of the scrotum, and he was referred to our hospital. We performed surgical resection of the mass, left testis, and bilateral superficial inguinal nodes. Histopathological findings revealed leiomyosarcoma of the scrotum. He is free of disease at 16 months after the operation.

(Hinyokika Kyo 58 : 117-120, 2012)

Key words : Scrotum, Leiomyosarcoma

緒 言

陰囊平滑筋肉腫は稀な疾患であり、本邦における現時点での報告は24例である。今回われわれは陰囊平滑筋肉腫の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：31歳，男性。既婚。挙児希望なし

主訴：左陰囊部の腫瘍

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2009年1月頃より左陰囊部に腫瘍を自覚していた。その後、徐々に増大するため同年9月に近医を受診し、皮膚生検にて squamous cell carcinoma を疑われた。同月、陰囊皮膚腫瘍として精査加療目的で当科に紹介となった。

初診時現症：身長 170 cm, 体重 68 kg, 体温 36.5°C, 血圧 110/52 mmHg, 脈拍 72/分, 整。全身状態は良好。視診では、左陰囊下部に鶏卵大で辺縁不正なびらんを伴った外方突出型の有茎性腫瘍を認めた (Fig. 1)。

触診上、弾性硬で圧痛はなく、左右の精巣および精巣上体に異常は認めなかった。

超音波検査では、腫瘍は充実性で内部は不均一で



Fig. 1. The tumor was irregular shaped, asymmetrical, protruding from the left scrotum.

あった。辺縁は比較的明瞭であったが精巣との境界は判然としなかった。精巣内部は両側とも正常であった。

血液生化学検査：WBC 6,530/ μ l, RBC 4.83万/ μ l, Hb 14.8 g/dl, PLT 30万/ μ l。生化学；Na 141 mEq/l, K 4.5 mEq/l, Cl 104 mEq/l, BUN 14 mg/dl, Cr 0.78 mg/dl, GOT 37 IU/l, GPT 69 IU/l, LDH 160 IU/l, T-Bil 0.7 mg/dl, ALP 219 IU/l, γ -GTP 130 IU/l, CRP 0.25 mg/dl。肝酵素の軽度の上昇を認める以外は、特に異常は認めなかった。SCC マーカーも正常範囲内であった。

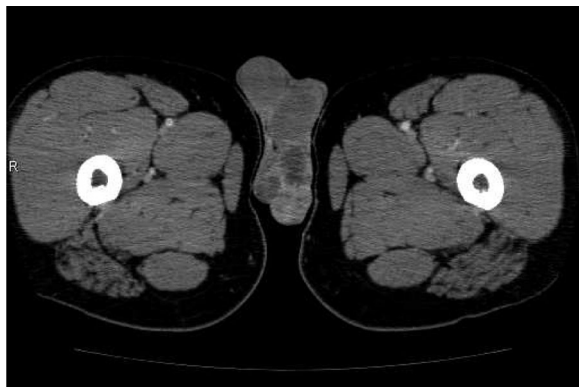


Fig. 2. CT revealed the tumor of the left scrotum.

画像診断：造影CT検査では左陰囊の皮膚直下から存在する、径5 cm大の充実性かつ内部が不均一に造影される腫瘍を認めるも、精巣への浸潤は認めなかった (Fig. 2)。また、明らかなリンパ節転移・遠隔転移は認めず、Ga 骨シンチグラフィーにおいても異常集積は認めなかった。

経過：前医からの紹介経過より皮膚癌としてまず皮膚科にコンサルトしたところ、有棘細胞癌との診断であった。有棘細胞癌であれば腫瘍の辺縁から2 cm外側の正常組織の追加切除が必要であり、その結果左精巣の摘除が必要であること、さらに所属リンパ節郭清が必要となってくることなどを踏まえて、形成外科とともに2009年10月、左陰囊腫瘍・精巣摘除術および両側浅鼠径リンパ節郭清を施行した。

手術所見：患側の陰囊は腫脹し、中央部腹側に腫瘍が存在し潰瘍を形成していた。精巣への腫瘍の直接浸潤は明らかではなかったものの、精巣白膜付近まで腫瘍の基部が浸潤しており、精巣と一塊として摘出する方針となった。患側の陰囊底に軽度の癒着があったものの精巣と一塊に腫瘍を摘出することが可能であった。手術時間は65分で、出血量は少量であった。

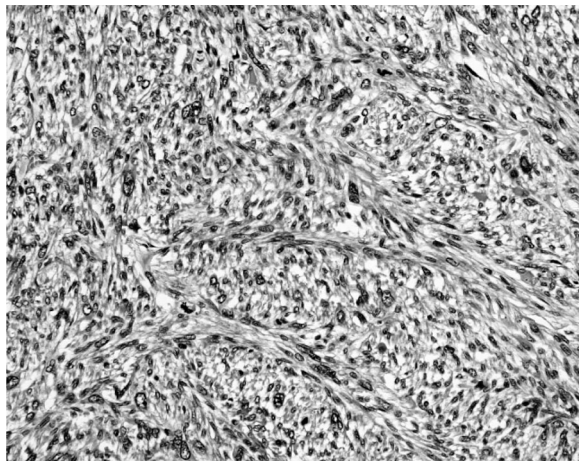


Fig. 3. Histological findings showed pleomorphic spindle cells with blunt-ended nuclei (HE, $\times 200$).

病理組織検査：HE染色では、細長く鈍端な核を有する紡錘形細胞の増殖と、大型で異型の強い核を有する細胞や核分裂像が散見された (Fig. 3)。また免疫染色の結果では、HHF35 (-), MyoD1 (-), SMA (+) であり、陰囊部腫瘍が平滑筋肉腫であることが判明した。また左精巣への肉腫の浸潤は認めず、左右の浅鼠径リンパ節への転移も認めなかった。現在、術後16カ月を経過しているが再発・転移を認めず経過している。

考 察

平滑筋肉腫は本来、平滑筋細胞由来の軟部腫瘍で、軟部肉腫全体の5~10%を占めている¹⁾。通常発生部位から主に、①皮膚・皮下型、②腸間膜・後腹膜型、③血管隆起型の3タイプに分けられ、発生臓器別では胃が最も多く、次いで大腸・小腸と続き、消化管のみで約70%を占めるといわれている²⁾。自験例は①の分類に属すると考えられ、中でも陰囊内発生は非常にめずらしく、本邦では現在までにわれわれが調べうる限りで24例の報告しかされていない³⁻⁶⁾。陰囊内腫瘍は最外層の皮膚から精巣鞘膜までを原発とし、精巣上体・精巣・精索とは関係のない腫瘍を陰囊内腫瘍と定義されている⁷⁾。Tomobeらが報告した120例に行った陰囊内腫瘍の調査では、15例 (12.5%) が前述の定義通りで、それ以外はすべて精巣腫瘍であった。15例の内訳は、malignant lymphoma・paratesticular rhabdomyosarcoma・epidermoid cyst・cyst of tunica testis・adenomatoid tumor・(metastatic tumor) となっており、いずれも発症率において有意な差は認めていなかった⁸⁾。

今回、自験例を含めた陰囊平滑筋肉腫25例で比較・検討を行った (Table 1)。

発症年齢は、0.3~79歳までで中央値は50歳であった。18例 (72%) が40代~60代で発症しており、比較的中高齢者に多く認めていた。主訴は21例 (84%) が無痛性腫瘍であった。これは、原発部位が陰囊であることもあり、痛みなどの症状が出現していない比較的早期の段階で受診に至っている事を示唆している。左右における発生部位ではやや左側に多く認めていた (右9例、左15例)。腫瘍の大きさは、計測施行例の中で78%が6 cm以下であった。治療は全例で手術療法が施行されており、21例が手術療法のみで、術前に転移を認めた2例を含める4例で術後化学療法が施行されていた。予後は、報告22例において平均観察期間16カ月で81%が生存かつ再発も認めていない。3例が癌死であったが、これらはすべて術前に転移を認めていた。22例における術式は、腫瘍摘出のみおよび腫瘍摘出+精巣摘除がおのおの10例ずつで、2例が腫瘍摘出+精巣摘除+リンパ節郭清であった。22例における術

Table 1. Twenty-five cases of leiomyosarcoma of the scrotum reported in Japan

No.	Report year	Old	Chief complaint	Site	Sizu (cm)	Therapy	Metastasis	Period (month)	Prognosis
1	1978	48	無痛性腫瘍	L	11×8×4	腫瘍摘出	—	24M	生存
2	1980	58	無痛性腫瘍+穿孔	L	4×3.5×3	腫瘍摘出+精巣摘除	—	10M	生存
3	1986	60	無痛性腫瘍	R	手拳大	外陰全摘+化療	+	6M	癌死
4	1986	47	無痛性腫瘍	R	6×3×2	腫瘍摘出+精巣摘除	—	5M	生存
5	1989	63	無痛性腫瘍	L	7×6×4	腫瘍摘出+精巣摘除+化療	—	11M	生存
6	1989	0.3	陰嚢腫大	R	6×4×4	精巣摘除	—	9M	生存
7	1992	61	無痛性腫瘍	R	不明	腫瘍摘出+化療	+	21M	癌死
8	1992	60	無痛性腫瘍	R	3×2.5×2.5	腫瘍摘出+精巣摘除+LN 部済	—	13M	生存
9	1995	40	有痛性腫瘍	L	3.2×3	腫瘍摘出	—	4M	生存
10	1996	16	無痛性腫瘍	R	13×9×10	精巣摘除	—	不明	生存
11	1996	44	無痛性腫瘍	L	3.2×3×2.9	腫瘍摘出	—	36M	生存
12	1998	57	無痛性腫瘍	L	不明	陰嚢摘出	+	13M	癌死
13	1998	27	有痛性腫瘍	L	鶏卵大	腫瘍摘出	不明	不明	不明
14	1999	79	無痛性腫瘍	L	4×3.5×3.2	腫瘍摘出	—	2M	生存
15	1999	47	有痛性腫瘍	L	4.5×3×3	腫瘍摘出+精巣摘除	—	24M	生存
16	2000	68	無痛性腫瘍	R	6×5.5×5.5	精巣摘除	—	12M	不明
17	2000	27	有痛性腫瘍	L	7×6×3.5	腫瘍摘出	—	41M	生存
18	2001	58	陰嚢腫大	L	手拳大	精巣摘除	不明	不明	不明
19	2001	65	無痛性腫瘍	L	母指頭大	腫瘍摘出+精巣摘除	—	3M	生存
20	2001	68	陰嚢腫大	R	5×4×3	精巣摘除	—	6M	生存
21	2006	59	無痛性腫瘍	R	6×4.5×4	腫瘍摘出+術後化療	—	20M	肺転移
22	2006	39	無痛性腫瘍	L	6×5×4	腫瘍摘除	—	5M	生存
23	2008	60	無痛性腫瘍	中央	2.5×1.3×2.2	腫瘍摘出	—	60M	生存
24	2009	68	無痛性腫瘍	L	2.2	腫瘍摘出	—	9M	生存
自験例	2010	31	無痛性腫瘍	L	5.2×3.5×5	腫瘍摘出+精巣摘除+LN 部済	—	16M	生存

式に明らかな差は認めなかった。

以上より、治療法は手術療法が基本であるが、手術方法における予後については現在のところ症例数が少なく有意な差は得られていない。術前において、腫瘍と精巣、精巣上体、精索との明確な判別が困難な症例においては、精巣摘除を含めた拡大手術を考慮する必要があると考えられるが、手術方法については今後さらなる検討が必要になると思われる。リンパ節郭清については、軟部組織原発の肉腫のリンパ節転移は5%以下で、遠隔転移のほとんどは血行性転移と言われており⁹⁾、25例中3例は術前に肺・肝・骨に転移を認めていたが、リンパ節転移が発見された症例はなかった。したがって、リンパ節郭清の必要性については現段階では意見の別れるところである。化学療法については、平滑筋肉腫では一般的に CYVADIC 療法 (cyclophosphamide, vincristine, adriamycin, dacarbazine) や CYVADACT 療法 (cyclophosphamide, vincristine, adriamycin, actinomycin D) などが知られているが有効率は20~30%と低く¹⁰⁾、陰嚢原発症例においては1例で肺転移巣に対するパクリタキセルと塩酸ゲムシタピンの併用療法が有効であったと報告されているものの、現在のところはその他の抗癌剤も含めてまだ有

効な治療効果は証明されていない³⁾。今後は症例のさらなる集積により病態の把握、詳細な治療法の検討が必要であると考えられる。

今回の自験例では、術後に前医からの生検標本を再度検討したが、標本は壊死組織が多く詳細な免疫染色が施行できなかったため、術前に陰嚢平滑筋肉腫と診断するのは困難であった可能性が高いと考えられる。また術中所見においても、腫瘍は広範囲で潰瘍を形成していたため、肉眼的に腫瘍の鑑別を行うことは困難であった。仮に術前に平滑筋肉腫と判明していても、所属リンパ節の有無などは文献上明らかにされておらず、いずれにせよ治療内容は本術式を採用したであろうと考えられる。

平滑筋肉腫の予後は一般的に不良とされているが、陰嚢内原発例においては、後腹膜・腸間膜原発と比較して発見されやすく早期に根治手術ができること³⁾、肉様膜など膜性構成物が一種の防御機構として働くこと¹¹⁾などから予後は比較的良好であると考えられている。転移を有さずに比較的早期の段階で広範囲摘除が施行されれば、再発・転移の起こる可能性は低く、生存期間が期待できると考えられる。本症例においても比較的早期の段階で広範囲摘除が施行されており術

後16カ月経過した現在も良好な経過を送れているが、今後再発・転移を視野に入れた厳重な経過観察が不可欠であると思われる。

結 語

陰嚢平滑筋肉腫の1例を経験したので報告した。

文 献

- 1) 古屋光太郎, 網野勝久: 悪性軟部腫瘍の分類とその治療成績. 癌と化療 **6**: 513-521, 1979
- 2) Salvadori B, Cusumano F, Delledonne V, et al.: Surgical treatment of 43 retroperitoneal sarcomas. Eur J Surg Oncol **12**: 29-33, 1986
- 3) 吉川慎一, 鮫島 剛, 野田賢治郎, ほか: 肺転移巣に新規抗癌剤による化学療法が有効であった陰嚢平滑筋肉腫の1例. 泌尿紀要 **52**: 737-740, 2006
- 4) 菅谷 久, 丸山 浩, 大塚藤男, ほか: 陰嚢平滑筋肉腫の1例. 臨皮 **60**: 1055-1057, 2006
- 5) 尾畑紘史, 作間俊治: 陰嚢平滑筋肉腫の1例. 西日泌尿 **70**: 503-505, 2008
- 6) 石田 勝, 塚本拓司, 長倉和彦: 短期間に増大傾向を認めた陰嚢平滑筋肉腫. 臨泌 **63**: 267-269, 2009
- 7) Lowsley OS and Kiriwin TJ: Anatomy of the scrotum. Clinical Urology edited by Lowsley OS and Kiriwin TJ 3rd ed, pp 174, The Williams and Wilkins Company, Baltimore, 1956
- 8) Tomobe M, Miyanaga N and Akaza H: Intrascrotal tumors; a clinicopathologic study of 15 cases. Jpn J Urol **91/9**: 618-622, 2000
- 9) Rosenberg SA and Glantine E: The management of local and regional soft-tissue sarcoma. Cancer Principles and Practice of Oncology edited by DeVita V, Hellerman S and Rosenberg S, pp 697-706, Lippincott Co, Philadelphia, 1985
- 10) Yap BS, Baker LH, Sinkovics JG, et al.: Cyclophosphamide, vincristine, adriamycin, and DTIC (CYVADIC) combination chemotherapy for the treatment of advanced sarcomas. Cancer Treat Rep **64**: 93-98, 1980
- 11) Leu KM, Ostruzka IJ, Shewach D, et al.: Laboratory and clinical evidence of synergistic cytotoxicity of sequential treatment with gemcitabine followed by docetaxel in the treatment of sarcoma. J Clin Oncol **22**: 1706-1712, 2004

(Received on July 21, 2011)
(Accepted on October 25, 2011)