

精索脂肪平滑筋肉腫の1例

長岡赤十字病院泌尿器科 (部長: 森下英夫)

金子 公亮, 小池 宏, 森下 英夫

長岡赤十字病院病理部

江 村 巖

A CASE OF LIPOLEIOMYOSARCOMA OF THE SPERMATIC CORD

Masaaki KANEKO, Hiroshi KOIKE and Hideo MORISHITA

From the Department of Urology, Nagaoka Red Cross Hospital

Iwao EMURA

From the Department of Pathology, Nagaoka Red Cross Hospital

A 54-year-old male was referred to our hospital with the chief complaint of a painless inguinal mass. A hard mass was palpable beside the left spermatic cord, which was covered with a soft tissue mass. Computed tomographic scan showed an inguinal mass, which was well enhanced to vascular density. The operative appearance indicated a tumor in the left spermatic cord, so we performed a radical orchiectomy. Histopathological diagnosis was lipoleiomyosarcoma. Lipoleiomyosarcoma of the spermatic cord is quite rare, and our case was considered as the first report in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 49 : 337-339, 2003)

Key words : Lipoleiomyosarcoma, Spermatic cord

緒 言

脂肪肉腫において, その一部に平滑筋肉腫様の分化を示すことは稀であるがその発生例はいくつか散見される. その報告例の多くでは脱分化型脂肪肉腫の脱分化領域が平滑筋肉腫の所見を示すものである. しかしきわめて稀ではあるが, 分化型脂肪肉腫に平滑筋肉腫を混じた症例が報告されており, Evans¹⁾によって脂肪平滑筋肉腫と提唱された. 今回われわれは精索に発生した脂肪平滑筋肉腫の1例を経験したので報告する.

症 例

患者: 54歳, 男性

主訴: 左鼠径部腫瘍

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: うつ病にて当院精神医学科外来通院中

現病歴: 2002年1月頃より, 無痛性の左鼠径部腫瘍を自覚した. 5月23日, 近医より紹介されて当科を初診. 触診にて左精索に沿って径1.5 cm 大の硬い腫瘍を触れ, それに連なるようにして弾性軟の組織が陰嚢方向へ伸びていた. この腫瘍は周囲との癒着はなく可動性があった. 左精巣・精巣上体に異常所見はなかった. 左鼠径部腫瘍の診断の下に, 手術を目的として, 6月15日に当科入院となった.

入院時現症: 身長 174 cm, 体重 76 kg, 血圧 120/

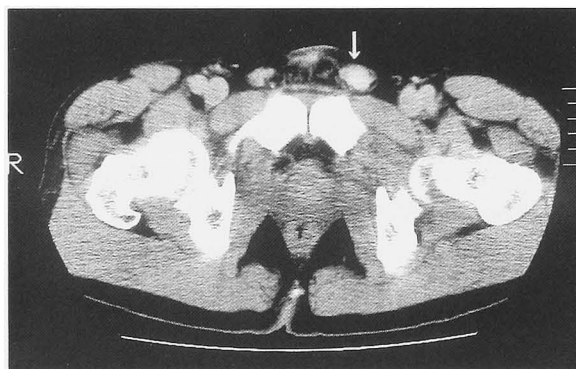


Fig. 1. Computed tomographic scan shows a well enhanced inguinal mass (arrow).

86 mmHg, 脈拍76/分, 左鼠径部の腫瘍以外に胸腹部には異常所見は認められなかった. 血液検査上, 明らかな炎症所見は認められなかった.

画像診断: 超音波検査では左鼠径部に 1.0×1.6×1.5 cm の境界明瞭な腫瘍を認め, 内部は均一な高エコーで, 石灰化は認めなかった. 骨盤 CT では, 左鼠径部に ϕ 1.5 cm で, 強く造影される腫瘍を認めた (Fig. 1).

既往歴に陰嚢外傷・陰嚢水腫・精索静脈瘤などはなかったため, 腫瘍性病変を第一に考えて腫瘍摘出術を行うこととした.

手術所見: 2002年6月17日, 腰椎麻酔下に左鼠径部から陰嚢へ向かう縦切開を加え, まず左精索を同定した. 腫瘍は精索内にあり黄色調の柔らかい組織で覆わ

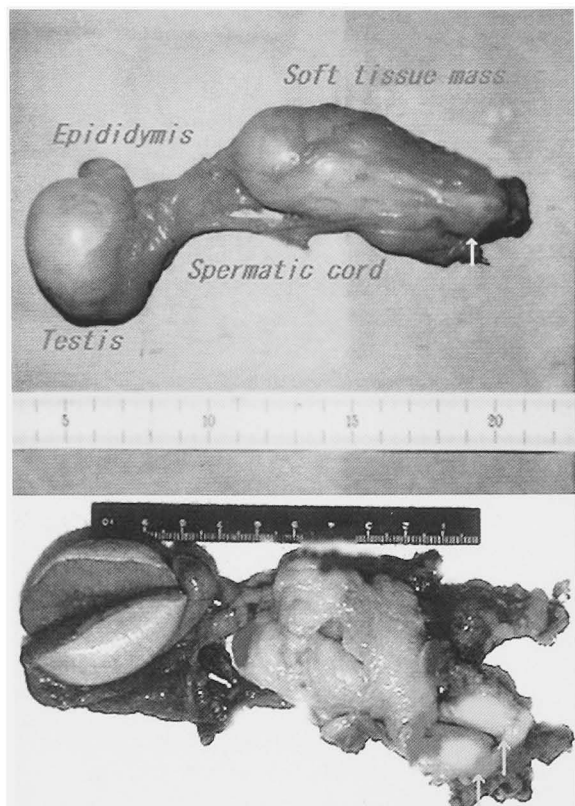
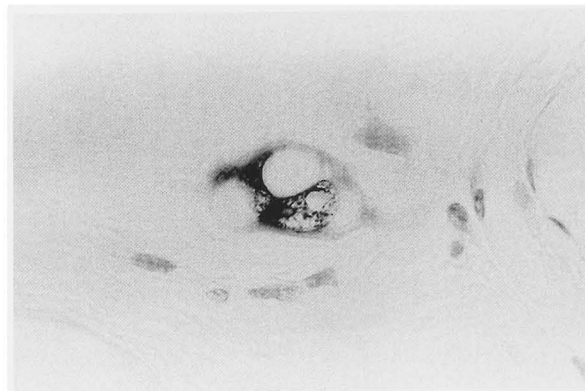


Fig. 2. Macroscopic appearance of the surgical specimen. The tumor was separated from the testis and spermatic cord. A hard mass (arrow) was covered with a soft tissue mass.

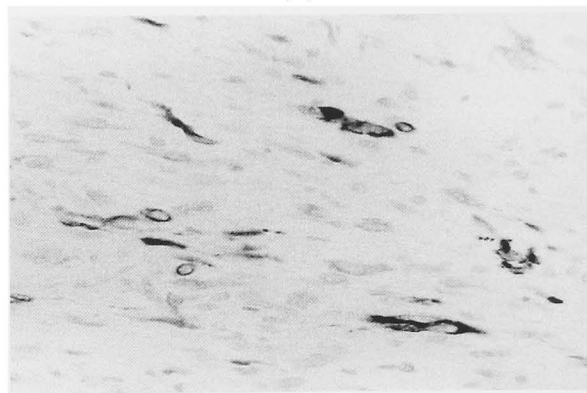
れており、精管・血管系とは離れていたが腫瘍性病変が強く疑われたため、高位精巣摘除術を施行した。

摘出標本：腫瘍の大きさは、 $1.5 \times 1.8 \times 1.5$ cm で白色硬の腫瘍とこれを覆うように脂肪腫様の組織からなっていた。精巣・精巣上体に異常はなし。精索・血管系との連続性はなく、浸潤傾向も認められなかった (Fig. 2)。

病理組織学的所見：肉眼的には 3×4 cm 大の黄色で脂肪腫に類似した組織に連続して、白色腫瘍を認めた。前者は柔らかく、境界不明瞭であった。病理組織学的には良く分化した脂肪細胞が小葉を形成して増殖しており、それに混じって異型性を有する線維芽細胞様の細胞や spider web type の脂肪芽細胞を認め、myxoid change を伴っていた。免疫組織化学的に脂肪芽細胞は S-100 陽性 (Fig. 3A)，線維芽細胞様細胞は HHF-35・Desmin・CD34・S-100 がそれぞれ一部の細胞に陽性、HMB-45 は陰性で、高分化型脂肪肉腫（脂肪腫様脂肪肉腫）の所見であった。後者は硬く境界明瞭で、線維芽細胞様の異型細胞が一部は索状に、一部は錯綜して増殖していた。高倍率10視野あたり5～7の細胞分裂像を認めた。免疫組織化学的には HHF-35 と Desmin が陽性 (Fig. 3B)，S-100・CD34・HMB-45 は陰性で平滑筋肉腫の所見であっ



(A)



(B)

Fig. 3. Microscopic appearance of the tumor. A: Lipoblast (S-100: positive, $\times 250$). B: Leiomyosarcoma (Desmin: positive, $\times 100$).

た。組織学的には両者の間に移行があった。

術後経過：経過は順調であり、6月24日に退院した。術後4カ月の現在でも転移や再発を認めていない。

考 察

精索腫瘍では脂肪腫が最も多く、肉腫がこれに続き、横紋筋肉腫の発生が高頻度にみられる。その他の肉腫では、平滑筋肉腫・線維肉腫・脂肪肉腫などが報告されている。その脂肪肉腫においては、平滑筋肉腫様の分化を伴う症例は稀であり、その多くは脱分化型脂肪肉腫の脱分化領域が平滑筋肉腫の所見を示す症例である。しかし、ごく稀に分化型脂肪肉腫において、平滑筋肉腫を混じたものが報告されており、1990年に Evans によって脂肪平滑筋肉腫として提唱された¹⁾。Folpe と Weiss は8症例を集計し検討を加えている²⁾。それによると、年齢は33歳から65歳で、比較的中高年の男性に多く、陰嚢・鼠径部の発生例は3症例で脂肪平滑筋肉腫の好発部位であり、その他に後腹膜・縦隔・肺・腹腔・膝窩にそれぞれ1症例ずつの報告例がある。

それらの報告例では病理組織学的に、良く分化した脂肪肉腫の組織の中に免疫染色により Desmin で陽

性に染色され, 平滑筋系と判断される異型細胞が混在している. われわれの症例では, Desmin 陽性の平滑筋系と考えられる異型細胞が混在した高分化型脂肪肉腫の中に良く分化した平滑筋肉腫の結節を認め, 両者の間には滑らかな移行があり, この平滑筋肉腫の結節は高分化型脂肪肉腫の中に混在していた平滑筋細胞が結節性に増殖した結果であろうと推測している.

臨床的には遠隔転移をきたすことは稀であるが局所再発率は高く, Folpe と Weiss が報告した8症例中5症例で局所再発をみている. 陰囊・鼠径部においては3症例のうち, 2症例に局所再発を認めている²⁻⁴⁾ 治療は外科的治療が一般的であり, 精索に発生した症例では平滑筋肉腫と同様に高位精巣摘除術が行われる. 追加治療に関しては, まだ見解が得られていない. 精索肉腫に対し, 局所再発予防に放射線療法を併用することは有用との報告もあるが^{5,6)}, 化学療法に関してはその有効性はまだ示されていない^{7,8)} 局所再発しやすいため, 画像診断などによる定期的経過観察は必須である. 今回われわれは, 左精索に発生したこの脂肪平滑筋肉腫に対し, 高位精巣摘除術を施行したあと, 追加治療をせずに定期的に経過観察をしているが, 摘除術後4カ月間再発を認めていない.

結 語

1. 今回われわれは, 54歳男性にみられた左精索に発生した脂肪平滑筋肉腫の1例を経験した.
2. 本症例は, 本邦では他臓器を含めて初めての脂肪平滑筋肉腫の報告例である.

文 献

- 1) Evans HL: Smooth muscle in atypical lipomatous tumors: a report of three cases. *Am J Surg Pathol* **14**: 714-718, 1990
- 2) Folpe AL and Weiss SW: Lipoleiomyosarcoma: a clinicopathologic study of nine cases including one with dedifferentiation. *Am J Surg Pathol* **26**: 742-749, 2002
- 3) Gomez-Ronan JJ and Val-Bernal JF: Lipoleiomyosarcoma of the mediastinum. *Pathology* **29**: 428-430, 1997
- 4) Suster S, Wong TY and Moran CA: Sarcomas with combined features of liposarcoma and leiomyosarcoma: study of two cases of an unusual soft-tissue tumor showing dual lineage differentiation. *Am J Surg Pathol* **17**: 905-911, 1993
- 5) Caton CN, Cummings BJ, Fornasier V, et al.: Adult paratesticular sarcomas: a review of 21 cases. *J Urol* **146**: 342-345, 1991
- 6) Fagundes MA, Zietman AL, Althausen AF, et al.: The management of spermatic sarcoma. *Cancer* **77**: 1873-1876, 1996
- 7) Glenn J, Kinsella T, Glatstein E, et al.: A randomized trial of adjuvant chemotherapy in adults with soft tissue sarcomas of the head and neck, breast and trunk. *Cancer* **55**: 1206-1214, 1985
- 8) Chang AE, Kinsella T, Glatstein E, et al.: Adjuvant chemotherapy for patients with high-grade soft tissue sarcomas of the extremities. *J Clin Oncol* **6**: 1491-1500, 1988

(Received on November 5, 2002)

(Accepted on February 16, 2003)