

陰 囊 内 脂 肪 肉 腫 の 1 例

景山 拓海¹, 小倉 友二¹, 兵藤伊久夫²
 谷田部 恭³, 曾我倫久人¹

¹愛知県がんセンター中央病院泌尿器科, ²愛知県がんセンター中央病院形成外科

³愛知県がんセンター中央病院遺伝子病理診断

A CASE OF INTRASCROTAL LIPOSARCOMA

Takumi KAGEYAMA¹, Yuji OGURA¹, Ikuo HYODO²,
 Yasushi YATABE³ and Norihito SOGA¹

¹The Department of Urology, Aichi Cancer Center Hospital

²The Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Aichi Cancer Center Hospital

³The Department of Pathology and Molecular Diagnostics, Aichi Cancer Center Hospital

A 69-year-old man was referred to our hospital with the chief complaint of a painless right scrotal swelling gradually increasing in size during the past 10 years. Testicular tumor markers were within the normal range. Ultrasonography showed an intrascrotal homogeneous mass. Computed tomography and magnetic resonance imaging revealed an inguinal mass, which mainly consisted of fat signal area and partially well enhanced in vascular density. Pre-surgical diagnosis was liposarcoma of spermatic cord estimated by radiographic examination and resection of the right intrascrotal tumor with high inguinal orchitectomy was performed. Histopathological diagnosis revealed well-differentiated liposarcoma. No recurrence phenomenon has been observed after 12 months without any adjuvant therapy. This case is the 129th report of intrascrotal liposarcoma in the Japanese literature.

(Hinyokika Kiyo 62 : 495-500, 2016 DOI : 10.14989/ActaUrolJap_62_9_495)

Key words : Liposarcoma, Scrotum

緒 言 症 例

脂肪肉腫は成人の後腹膜や下肢に好発する悪性軟部腫瘍であるが、陰嚢内に発生することは比較的稀である。今回われわれは10年の経過で緩徐に増大した陰嚢内高分化型脂肪肉腫を経験したので、自験例を含めた本邦報告例を集計し、考察を加えて報告する。

患 者 : 69歳, 男性
 主 訴 : 右陰嚢内の無痛性腫瘍
 既往歴 : 緑内障
 家族歴 : 特記すべき事項なし
 現病歴 : 10年前から右陰嚢内腫瘍を自覚していたが無症状のため放置していた。数カ月前からさらなる増

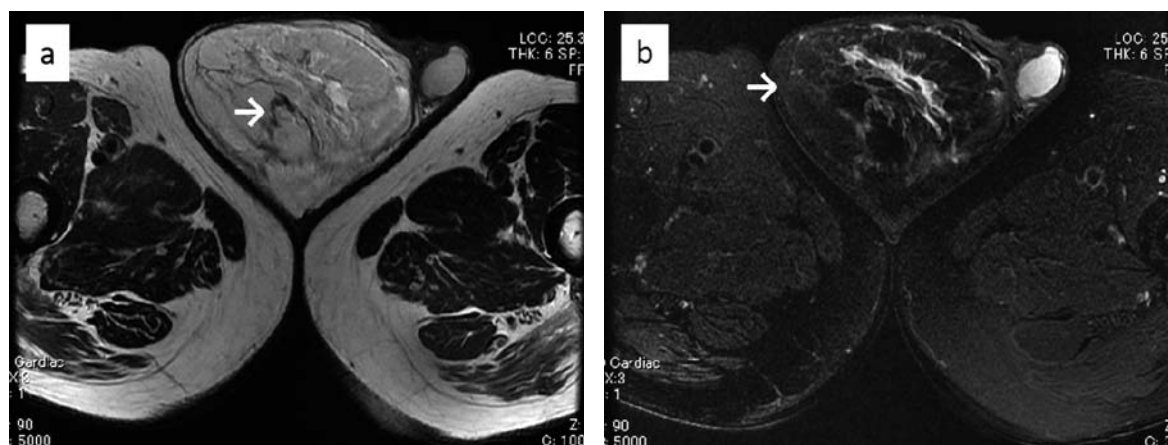


Fig. 1. a : T2 weighting image of pelvic area revealed the tumor mainly consisting of homological fat signal area, associated with lower signal area (closed arrow). b : Fat suppression T2 weighting image of pelvic area showed clearly fat signal area in the main tumor (closed arrow).

大傾向を自覚し、右精索腫瘍を疑われ紹介受診した。

初診時現症：身長 177 cm, 体重 76 kg. 右陰嚢内に乳児頭大で無痛性軟な腫瘍を認めた。

検査所見：血液一般, 血液生化学, 尿検査では異常を認めなかった。血中腫瘍マーカーはいずれも正常で、尿細胞診も陰性だった。

画像所見：超音波検査で右陰嚢内に内部均一な充実性腫瘍を認めた。腫瘍と精巣との境界は明瞭であった。

造影 CT では精巣右側に軟部影を含む脂肪性腫瘍 (15×8 cm) を認めた。後腹膜腔や腹腔内への浸潤や転移を疑う所見はなかった。

MRI では腫瘍内部は主に脂肪の信号で構成され、

一部に造影効果を有する索状構造を認めた (Fig. 1a, b)。腫瘍は右鼠径部から陰嚢内に留まっており、腹腔内への進展は否定的で、腫瘍は精索と連続していた。以上より右精索由来の脂肪肉腫と診断し、右高位精巣摘除術に準じた右精巣合併腫瘍摘除術を施行した。

手術所見：右鼠径部から陰嚢にかけて 15 cm の皮膚切開をおいた。皮膚直下から、内側は浅陰茎筋膜、外側は大腿筋膜まで、腫瘍と周囲脂肪組織および精巣を一塊にして剥離した。鼠径部では脂肪組織が鼠径管内へと連続していたため、鼠径管を解放し脂肪組織を可能な限り切除した。その際外腹斜筋腱膜、内腹斜筋腱膜、腹横筋腱膜の一部も合併切除したため、腹壁が

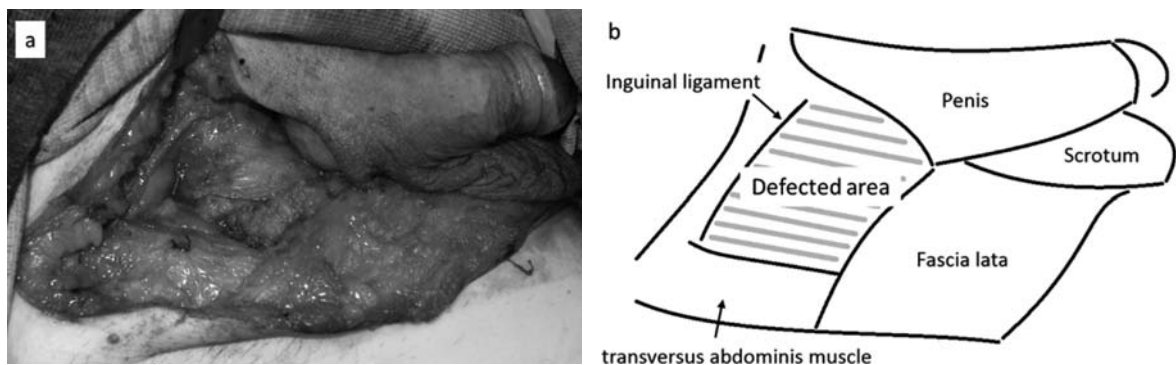


Fig. 2. a: Defected area of abdominal wall after resection of tumor with circumstantial fatty tissue. b: The scheme of defected area of abdominal wall.

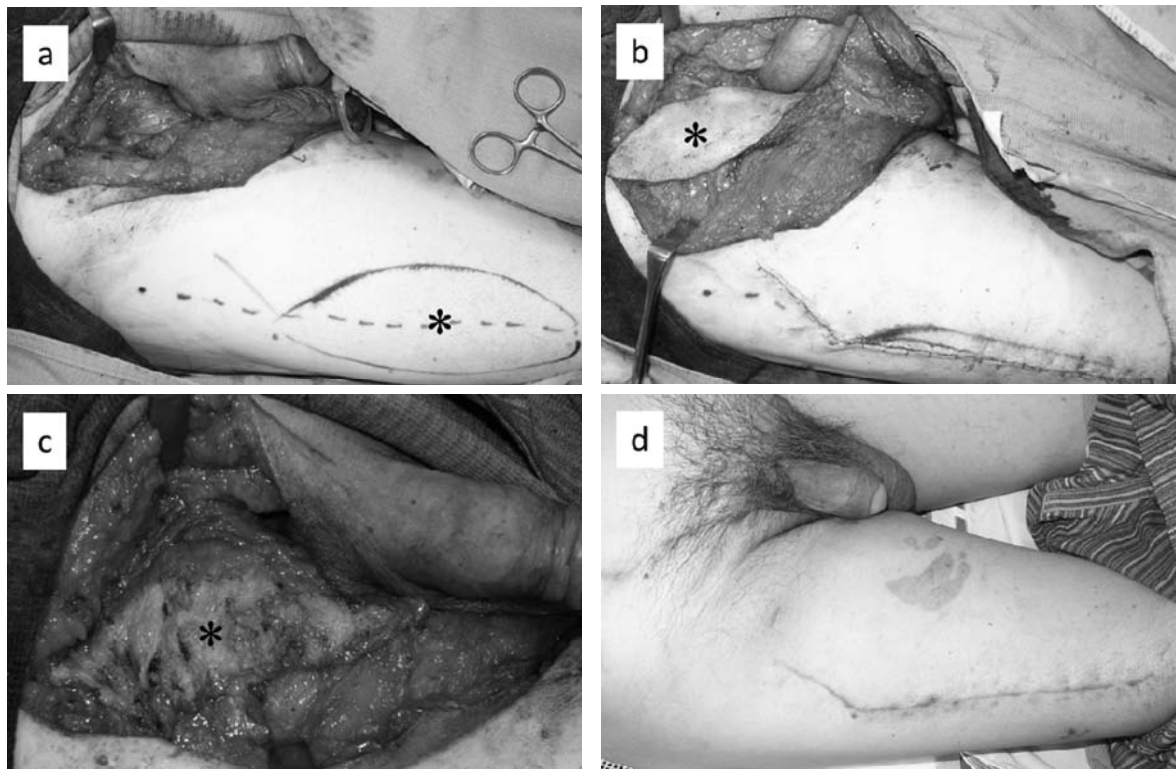


Fig. 3. a: Flap taking-site, marked on right thigh for anterolateral thigh flap (*). b: The flap (*) was attached to the inguinal region through the subcutaneous tunnel with a descending branch of the lateral femoral circumflex artery as nutritional blood vessel. c: Defected area was repaired with the flap without skin surface (*). d: The appearance of wounded area after 3 months.

大きく欠損した (Fig. 2a, b). そのため, 外側大腿回旋動脈下行枝による有茎性外側大腿皮弁をデザインし (Fig. 3a), 皮下トンネル経由で皮弁島を鼠径部へ移動させ (Fig. 3b), 真皮を剥離し欠損部を充填した (Fig. 3c). 皮膚は切除部位の両断端を縫合した.

また, 切除部頭側の右外腸骨領域に腫大したリンパ節を確認したため, 術中迅速病理診断を行った. しかし, 摘出リンパ節内に腫瘍細胞を認めず, 追加の骨盤内拡大リンパ節郭清は施行しなかった. 摘出標本の重量は 938 g であった.

病理診断: 腫瘍径は 10×6 cm, 断面は黄色であった (Fig. 4). 腫瘍は成熟した脂肪様組織が増生し, クロマチンに富む異型核の混在が散見されたが, 明らかな脱分化型成分は認めなかったため, 高分化型脂肪肉腫と診断した (Fig. 5a, b).

腫瘍は精巣内への浸潤は認めず, 切除断端は陰性であった. 根治的切除と考え, 追加治療は行わず経過観察とした. 術後 3 カ月で創部は治癒し (Fig. 3d), 術後 12 カ月の時点で局所再発, 遠隔転移を認めていない.

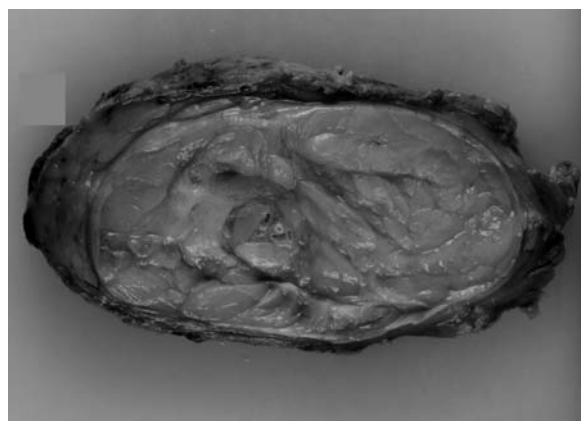


Fig. 4. Gross specimen of the tumor revealed yellow fatty appearance.

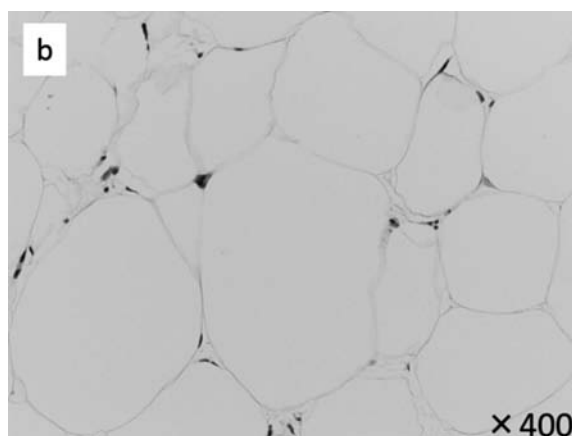
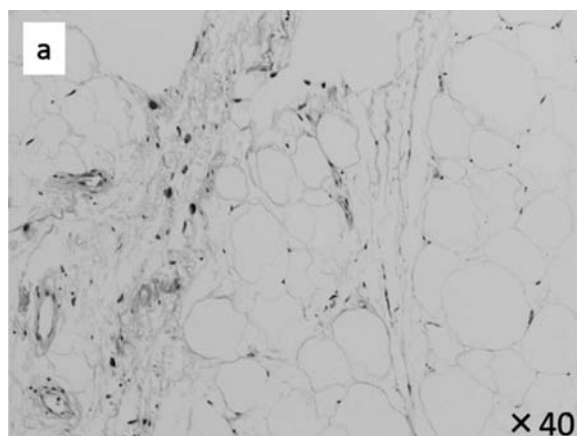


Fig. 5. Histopathological results revealed well-differentiated liposarcoma with mature-appearing adipose tissue and spindle cells with hyperchromatic nuclei (HE: hematoxylin-eosin staining (a: ×40, b: ×400)).

考 察

脂肪肉腫は成人の後腹膜や下肢に好発する悪性軟部腫瘍である. 尿路生殖系に発生するものは 4.4%¹⁾, 陰嚢内の発生は 3.6%²⁾とされ, 比較的稀な疾患である. 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%), 肉様膜と精巣固有鞘膜間などであるが³⁾, 実際は腫瘍の大きさや癒着の程度により発生母地を特定するのが困難な症例も多い⁴⁾. 本邦では精索脂肪肉腫と, 精索脂肪肉腫を含めた広義の陰嚢内脂肪肉腫に分類されることが多い.

広義の陰嚢内脂肪肉腫の本邦報告は, 2001年に佐藤ら⁵⁾が 91 例を集計している. その後われわれが調べた限りにおいて 37 例の症例報告があり, 自験例は本邦報告第 129 例目である.

2001 年以降の報告例の集計では (Table 1), 平均年齢は 62 歳, 患側は左 19 例 (51%), 右 18 例 (49%), 不明 1 例と左右差はなかった. 治療は全例外科的切除が施行されており, 術式は高位精巣摘除術が 26 例 (68%), 腫瘍摘除術が 12 例 (32%) であった. 局所再発を来した頻度は, 高位精巣摘除術を施行された例で 12% (3/26) であるのに対して, 腫瘍摘除術のみで合併切除されなかった例では 50% (6/12) と頻度が高く, 局所再発率を下げるためには高位精巣摘除術が必要と考えられた. 外科的切除の問題点としては, 脂肪肉腫は肉眼的に正常な脂肪組織と区別が困難であるため, 周囲組織を含めた広範な切除が再発を予防する上で重要とされている⁶⁾. また一見被膜に覆われているようにみえても周囲組織との境界において偽被膜の状態が多く, 腫瘍摘除術のみでは不十分であるとの報告もある⁴⁾. 自験例においても高位精巣摘除術に準じた精巣合併摘除を選択し, 欠損部を充填するために筋皮弁術を併用し, 周囲脂肪組織を腫瘍と一塊にして可能な限り摘出した.

Table 1. Characteristics of 38 cases of intrascrotal liposarcoma in recent Japanese literature between 2001 and 2015

No	年度	報告者	出典	年齢	患側	術式	病理組織型
92	2001	小野ら	西日泌尿, 2001	62	左	腫瘍摘除術	高分化型
93	2002	山口ら	日臨外会誌, 2002	70	右	腫瘍摘除術	高分化型
94	2002	土井ら	豊中病医誌, 2002	23	右	腫瘍摘除術	高分化型
95	2002	萩原ら	泌尿紀要, 2002	78	右	高位精巣摘除術	多形型
96	2003	金子ら	泌尿紀要, 2003	54	左	高位精巣摘除術	高分化型
97	2004	神沢ら	臨泌, 2004	54	左	高位精巣摘除術	脱分化型
98	2004	野澤ら	臨泌, 2004	78	右	高位精巣摘除術	粘液型
99	2006	吉川ら	泌尿紀要, 2006	84	右	高位精巣摘除術	高分化型
100	2006	吉田ら	泌尿紀要, 2006	46	右	高位精巣摘除術	高分化型
101	2006	澤崎ら	泌尿紀要, 2006	60代	右	高位精巣摘除術	高分化型
102	2006	角山ら	埼玉県医誌, 2006	86	左	高位精巣摘除術	高分化型
103	2006	吉田ら	泌尿紀要, 2006	40代	右	高位精巣摘除術	粘液型
104	2007	長江ら	日消外会誌, 2007	44	左	腫瘍摘除術	脱分化型
105	2007	斉藤ら	臨泌, 2007	70	右	高位精巣摘除術	高分化型
106	2007	平山ら	泌尿器外科, 2007	60	右	高位精巣摘除術	高分化型
107	2007	波多野ら	泌尿紀要, 2007	78	左	高位精巣摘除術	高分化型
108	2007	原田ら	日臨外会誌, 2007	78	左	腫瘍摘除術	高分化型
109	2007	浅井ら	西日泌尿, 2007	65	右	高位精巣摘除術	脱分化型
110	2008	舟橋ら	泌尿紀要, 2008	79	右	高位精巣摘除術	脱分化型
111	2008	角田ら	泌尿紀要, 2008	63	左	高位精巣摘除術	高分化型
112	2008	角田ら	泌尿紀要, 2008	69	左	腫瘍摘除術	脱分化型
113	2009	赤井畑ら	臨泌, 2009	76	左	高位精巣摘除術	脱分化型
114	2009	伊藤ら	泌尿紀要, 2009	61	左	腫瘍摘除術	脱分化型
115	2009	計屋ら	西日泌尿, 2009	45	左	腫瘍摘除術	高分化型
116	2010	長井ら	泌尿器外科, 2010	72	左	高位精巣摘除術	高分化型
117	2010	上原ら	泌尿紀要, 2010	59	左	腫瘍摘除術	高分化型
118	2010	阿部ら	泌尿器外科, 2010	81	左	高位精巣摘除術	高分化型
119	2011	中尾ら	臨泌, 2011	69	右	高位精巣摘除術	高分化型
120	2011	井上ら	日臨外会誌, 2011	66	左	高位精巣摘除術	高分化型
121	2012	池田ら	泌尿器外科, 2012	33	不明	腫瘍摘除術	粘液型
122	2012	山崎ら	西日泌尿, 2012	42	左	高位精巣摘除術	高分化型
123	2012	豊田ら	泌尿器外科, 2012	44	右	高位精巣摘除術	高分化型
124	2012	豊田ら	泌尿器外科, 2012	32	右	高位精巣摘除術	高分化型
125	2012	大畠ら	鳥取赤十字病医誌, 2012	50代	左	高位精巣摘除術	脱分化型
126	2013	新野ら	診断病理, 2013	40代	右	腫瘍摘除術	粘液型
127	2013	森ら	広島医学, 2013	70	左	腫瘍摘除術	高分化型
128	2013	重松ら	広島病医誌, 2013	60	右	高位精巣摘除術	粘液型
129	2015	自験例		69	右	高位精巣摘除術	高分化型

転移は血行性に起こるとされており⁷⁾, リンパ節郭清は必要ないとする意見が多い. また術前に鼠径リンパ節転移を疑われた症例でも, 術中にリンパ節サンプリングを行うことでリンパ節郭清を回避できたという報告もある⁸⁾. 一方で陰嚢内脂肪肉腫のために腫瘍死した患者の剖検で, 肺・肝・消化管・骨に加えリンパ節に転移を認めた例も報告されており⁹⁾, リンパ節郭清の是非は明らかでない. 自験例では術中に患側外腸骨リンパ節の迅速病理診断を施行し, リンパ節内に腫瘍細胞が存在しないことを確認したため, リンパ節郭清は追加しなかった.

脂肪肉腫の病理組織学的分類は, 一般に2002年のWHO 分類が用いられ, 1) 異型脂肪腫様腫瘍/高分化型脂肪肉腫, 2) 脱分化型, 3) 粘液・円形細胞型, 4) 多形型, 5) 混合型に分類される¹⁰⁾. 病理組織の記載のあった123例の組織型の内訳は, 高分化型83例(67%), 脱分化型8例(7%), 粘液・円形細胞型19例(15%), 多形型2例(2%), 混合型11例(9%)で, 自験例と同じ高分化型が最も多かった.

補助療法としては術後放射線療法や化学療法が有用であったという報告も散見されるが^{11,12)}, 一般的に有効性は低いとされ, 標準的治療法の確立には至って

Table 2. Summarized recurred 15 cases of intrascrotal liposarcoma in recent Japanese literature between 2001 and 2015

No	年度	報告者	出典	初発年齢	再発までの期間	再発部位	再発時治療	病理組織型	
								初発時	再発時
7	2001	小野ら	西日泌尿, 2001	62	5年6カ月	同局所	腫瘍摘除	高分化型	脱分化型
8	2002	山口ら	日臨外会誌, 2002	70	3カ月	同局所	腫瘍摘除	高分化型	高分化型
9	2002	土井ら	豊中病医誌, 2002	23	9カ月	骨・内臓・リンパ節	化学療法	高分化型	脱分化型
10	2002	萩原ら	泌尿紀要, 2002	78	6年	同局所	腫瘍摘除	多形型	多形型
11	2006	吉田ら	泌尿紀要, 2006	46	6年	同局所	腫瘍摘除	高分化型	高分化型
12	2007	長江ら	日消外会誌, 2007	44	5年	骨盤内	腫瘍摘除	脱分化型	脱分化型
13	2007	原田ら	日臨外会誌, 2007	78	5年	同局所	腫瘍摘除+化学療法	高分化型	脱分化型
14	2011	中尾ら	臨泌, 2011	69	6年	骨盤内	腫瘍切除	高分化型	高分化型
15	2012	池田ら	泌尿器外科, 2012	33	1年	下大静脈内および後腹膜腔	腫瘍摘除+放射線治療	粘液型	多形型

いない。

脂肪肉腫の予後は組織型により相違がある。高分化型・粘液型は他の組織型より予後が良好であり、高分化型の5年生存率は85%、粘液型は77%と報告されているが¹³⁾、高分化型であっても脱分化すると予後が非常に悪化する¹⁴⁾。脱分化は時間依存性に¹⁵⁾、高分化型の10~15%に発生し、脱分化までの平均期間は7.7年、脱分化後の5年生存率は28%と低値である¹⁶⁾。脱分化は再発転移後に発生することが多く²⁾、本邦における、死亡2例(1.6%)の報告においても、初発時は高分化型であったが、再発・死亡時はいずれも脱分化型へと変化していた。自験例は10年の経過にも関わらず脱分化は確認できなかったが、今後も厳重な経過観察が必要と考えられた。

陰嚢内脂肪肉腫の再発例は佐藤ら⁵⁾が6例を集計しており、今回それ以後の9例を加え、計15例を集計した(Table 2)。再発例は全体の12%、再発までの平均期間は4.4年(範囲、1カ月~12年)、そのうち9例が初期治療後5年以上経過してからの再発であった。再発部位は同局所が11例、骨盤内または後腹膜腔が3例、骨・内臓・リンパ節への全身転移が1例存在した。再発治療は全身転移を来した1例を除いて全例に腫瘍摘除術が施行され、化学療法または放射線治療が追加された例がそれぞれ1例存在した。再発例の初診時の組織型は、高分化型が9例、粘液型が4例、多形型が1例、脱分化型が1例であり、高分化型9例中3例(33.3%)で再発時に脱分化していた。局所以外に再発した場合は無症状で経過することが多く、通院経過観察の中断により再発発見が遅れ治療が難渋した例も散見されるため¹⁷⁾、長期にわたる経過観察が必要であると考えられた。

結 語

精索高分化型脂肪肉腫の1例を経験した。自験例は

陰嚢内脂肪肉腫として本邦報告第129例目と考えられ、文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Hare HF and Cerny MJ Jr: Soft tissue sarcoma: a review of 200 cases. *Cancer* **16**: 1332-1337, 1963
- 2) Evans HL: Liposarcoma: a study of 55 cases with a reassessment of its classification. *Am J Surg Pathol* **3**: 507-523, 1979
- 3) Montgomery E and Fisher C: Paratesticular liposarcoma: a clinicopathologic study. *Am J Surg Pathol* **27**: 40-47, 2003
- 4) 玉田博志, 鶴浦有弘, 金井秀明, ほか: 陰嚢内脂肪肉腫の1例. *岩手病医会誌* **37**: 74-77, 1997
- 5) 佐藤克彦, 藤村 敬, 杉本周路, ほか: 陰嚢内脂肪肉腫の1例. *泌尿器外科* **14**: 583-586, 2001
- 6) Vorstman B, Block NL and Politano VA: The management of spermatic cord liposarcomas. *J Urol* **131**: 66-69, 1984
- 7) Certo LM, Avetta L, Hanlon JT, et al.: Liposarcoma of spermatic cord. *Urology* **31**: 168-170, 1988
- 8) 山崎浩司, 後藤崇之, 向井尚一郎, ほか: 陰嚢内脂肪肉腫の1例. *西日泌尿* **74**: 376-379, 2012
- 9) Doi R, Hirota S, Sanma S, et al.: Dedifferentiated liposarcoma of the scrotum report of a case with unusual presentation. *豊中病医誌* **3**: 61-65, 2002
- 10) 江戸博美, 新本 弘, 曾我茂義, ほか: 陰嚢の精巢外腫瘍性病変のMRI. *臨放線* **60**: 349-359, 2015
- 11) 池田春樹, 兵地信彦, 永渕富夫, ほか: 下大静脈内に術後再発を認めた陰嚢内脂肪肉腫の1例. *泌尿器外科* **25**: 253-256, 2012
- 12) 斉藤 純, 角田洋一, 矢澤浩治, ほか: 術後放射線療法を行った精索脂肪肉腫. *臨泌* **61**: 445-447, 2007
- 13) Enzinger FM and Winslow DJ: Liposarcoma: a study of 103 cases. *Virchows Arch Pathol Anat Physiol Klin Med* **335**: 367-388, 1962

- 14) Weiss SW and Rao VK: Well-differentiated liposarcoma (atypical lipoma) of deep soft tissue of the extremities, retroperitoneum, and miscellaneous sites: a follow-up study of 92 cases with analysis of the incidence of "dedifferentiation". *Am J Surg Pathol* **16**: 1051-1058, 1992
- 15) 伊藤 聡, 桑原伸介, 上水流雅人, ほか: 精索より発症した脱分化型脂肪肉腫の1例. *泌尿紀要* **55**: 733-736, 2009
- 16) Henricks WH, Chu YC, Goldblum JR, et al.: Dedifferentiated liposarcoma: a clinicopathological analysis of 155 cases with a proposal for an expanded definition of dedifferentiation. *Am J Surg Pathol* **21**: 271-281, 1997
- 17) 長江逸郎, 土田明彦, 田辺好英, ほか: 広範囲浸潤性局所再発を来した鼠径部脱分化型脂肪肉腫の1例. *日消外会誌* **40**: 349-354, 2007

(Received on April 5, 2016)

(Accepted on May 11, 2016)