

頻回に再発する陰嚢水腫を契機に発見された 異時性両側精巣腫瘍の1例

新田 聡¹, 目 翔太郎¹, 遠藤 剛¹, 小峯 学¹

坂田 晃子², 堤 雅一¹, 河合 弘二³, 西山 博之³

¹日立製作所日立総合病院泌尿器科, ²日立製作所日立総合病院病理科

³筑波大学医学医療系腎泌尿器外科学

METACHRONOUS BILATERAL TESTICULAR TUMORS WITH FREQUENTLY RECURRENT HYDROCELE: A CASE REPORT

Satoshi NITTA¹, Shotaro SAKKA¹, Tsuyoshi ENDO¹, Manabu KOMINE¹,
Akiko SAKATA², Masakazu TSUTSUMI¹, Koji KAWAI³ and Hiroyuki NISHIYAMA³

¹The Department of Urology, Hitachi General Hospital

²The Department of Diagnostic Pathology, Hitachi General Hospital

³The Department of Urology, Faculty of Medicine, University of Tsukuba

We report a case of metachronous bilateral testicular tumors combined with hydrocele. A 46-year-old male presented with frequently recurrent left hydrocele. His medical history included a stage IIA right testicular tumor, which had been treated with right high orchiectomy and retroperitoneal lymph node dissection 22 years ago. Magnetic resonance imaging (MRI) showed hydrocele and a low intensity area in the left testis, and the patient underwent left high orchiectomy. After cytological examination of the hydrocele it was categorized as class V, and after a pathological study it was diagnosed as seminoma and embryonal carcinoma. Since postoperative computed tomography showed lung metastasis, treatment with bleomycin, etoposide, and cisplatin (BEP) was indicated. Three courses of BEP produced a complete response. No recurrent testicular tumor was seen at 3 months after the BEP therapy. A metachronous testicular tumor should be considered in patients with a history of testicular tumors who frequently develop recurrent hydrocele.

(Hinyokika Kyo 63 : 115-118, 2017 DOI : 10.14989/ActaUrolJap_63_3_115)

Key words : Hydrocele, Metachronous testicular tumors

緒 言

両側精巣胚細胞腫瘍（以下、精巣腫瘍）は精巣腫瘍全体の2%と比較的稀であるが、一側の精巣腫瘍を認めた場合、対側での発生リスクは25倍になるとの報告もある¹⁾。そのため、精巣腫瘍の管理においては、対側精巣の自己触診の必要性を説明するなどの対応が推奨される。今回、われわれは頻回に再発する陰嚢水腫を契機に発見された異時性精巣腫瘍の1例を経験した。自験例においては陰嚢水腫内容物の細胞診は陽性であった。これまで細胞診陽性の陰嚢水腫を伴った精巣腫瘍は3例しか報告がなく、本症例は文献上4例目と考えられる。

症 例

患 者 : 46歳, 男性

主 訴 : 左無痛性陰嚢内容腫大

既往歴 : 1994年に当院で右精巣腫瘍（病理 : 胎児性癌およびセミノーマ, 日泌分類 stage IIA, TNM分類

pT4N1M0, S1, stage IIA) の診断で右高位精巣摘除術および後腹膜リンパ節郭清術を施行され、寛解を得た。治療後12年経過観察したが再発を認めなかった。

家族歴 : 父・弟ともに不妊歴なし

生活歴 : 喫煙歴なし, 子供2人あり

現病歴 : 2016年2月に徐々に増大する左無痛性陰嚢内容腫大を自覚。他院で陰嚢水腫と診断され穿刺吸引（黄色透明, 350 cc）を施行された。穿刺後の触診で左精巣に硬結を触知したため3月10日に当院を紹介受診した。当院受診時もすでに陰嚢水腫を認めていたため、穿刺を施行し黄色透明の水腫内容を吸引したところで触診すると硬結を触知した。穿刺吸引後わずか数日で穿刺前程度まで貯留することが特徴的で1カ月間で計2回の穿刺を行った。腫瘍マーカーでは血中AFPおよびHCGの上昇は認めなかった。超音波検査では明らかな異常は指摘できなかったが、MRIではFig. 1に示すように左精巣に低吸収域を認め、精巣上体炎を考慮しつつも精巣腫瘍が否定できないことから5月に試験切開目的に入院した。

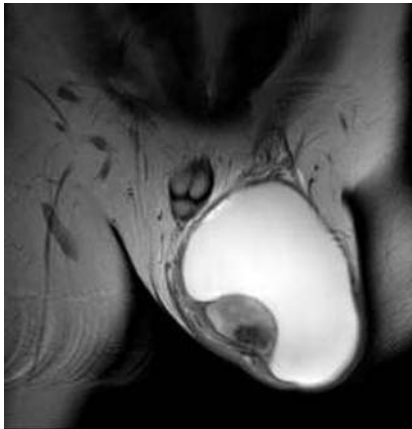


Fig. 1. MRI (T2WI) showed hydrocele and a low intensity area in the left testis.

身体所見：左陰嚢は超手拳大に腫大。他は異常なし。

検査所見：血算・生化学では LDH 238 U/l（基準値 102～204 U/l）以外は明らかな異常は認めない。腫瘍マーカーは AFP 3.4 mg/ml（基準値 7.0 mg/ml 以下）、HCG 1.4 mIU/ml（CLEIA，基準値 2.7 mIU/ml 以下）と正常範囲内であった。

画像所見：MRI では左陰嚢水腫とともに、左精巣に T2WI で 43×24 mm の低信号域を認めた (Fig. 1)。左精巣上体との境界は不明瞭だった。

手術所見：2016年5月に試験切開を施行した。まず陰嚢を切開し水腫を愛護的に創外に脱転して、術野を汚染しないように注意しながら水腫内容物を穿刺吸引した。水腫内容物は黄色透明で 400 cc であった。水腫摘除後に精巣を触診したところ、MRI に一致して精巣硬結を触知、硬結部は精巣上体と離れていた。以上より精巣腫瘍と診断し、左高位精巣摘除を施行し

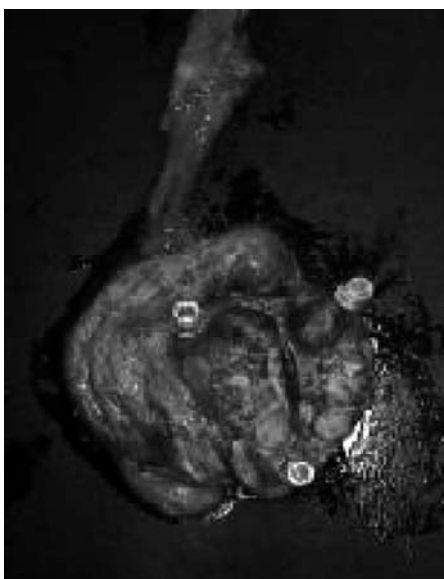


Fig. 2. The cut surface of the left testis was ash gray, red, and yellow.

た。精巣腫瘍の断面は灰白色調および赤褐色調と黄色調が混在していた (Fig. 2)。

水腫内容物の細胞診所見：リンパ球と混在して、細胞質の広い核の腫大した異型細胞を認め、胚細胞腫と判

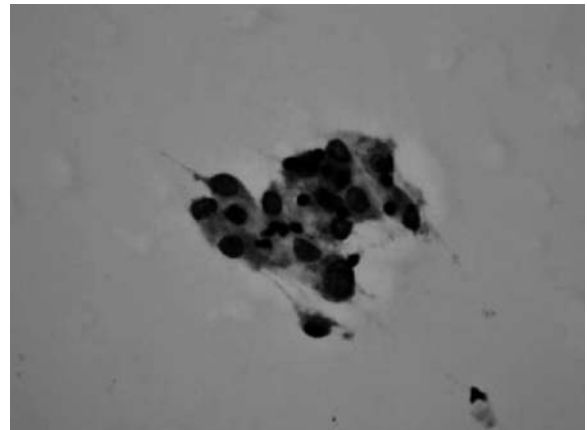
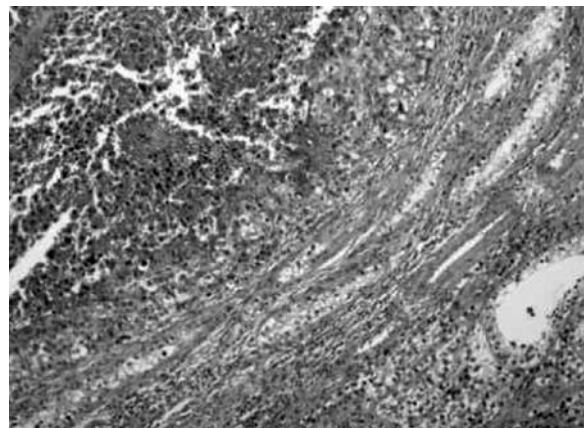
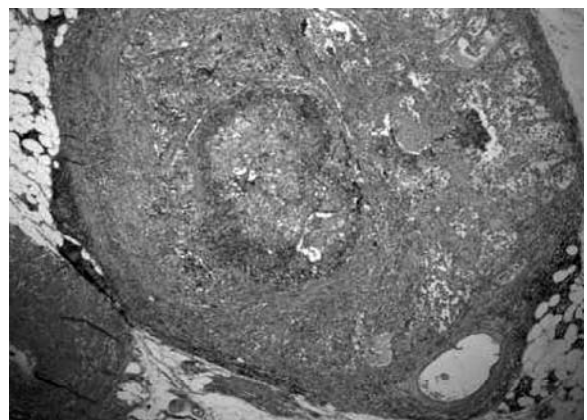


Fig. 3. A cytological examination demonstrated a two-cell pattern composed of atypical cells and lymphocytes. The atypical cells had large nucleoli, and their cytoplasm was wide.



a



b

Fig. 4. A histological examination of the left testicular tumor revealed seminoma (right side) and embryonal carcinoma (left side). b) The tumor cells had invaded the spermatic cord.

定された (Fig. 3).

病理所見: 腫瘍の大きさは $6.5 \times 5.6 \times 2.0$ cm であった. 病理学的にはやや大型で類円形の核を有する腫瘍細胞がリンパ球浸潤を伴って均一に密に充実性増殖を呈する腫瘍と, 大型で不整形の核を有する腫瘍細胞が充実性や腺管様構造を取りながら増殖し, 内外に出血や壊死を広範に伴う腫瘍があった. 前者はセミノーマ, 後者は胎児性癌と診断された (Fig. 4a). 精索断端は陰性であったが精索上体や精索の間質に静脈侵襲から周囲組織への浸潤を認め (Fig. 4b) たため pT3 と診断した. 腫瘍細胞の白膜面への露出は認めなかった. なお, 摘出された陰嚢水腫壁には肉眼的にも顕微鏡的にも腫瘍の播種は認めなかった.

術後経過: 手術所見を踏まえて胸腹部骨盤 CT で精査を行ったところ, 術前の胸部レントゲン写真では指摘できなかった最大径 12×11 mm の 3 個の肺転移を認めた. そのため左精巣腫瘍, pT3N0M1a, stage IIIB, IGCC 分類予後良好群と診断し, BEP 療法 3 コースを施行した. 化学療法後, 肺転移はすべて消失し完全寛解と判断した. 現在, 化学療法後 3 カ月を経過したが, 寛解を維持している. また, 左陰嚢部も含めて局所再発についても厳重に経過観察しているが再発を示唆する所見は認めていない.

考 察

精巣腫瘍は一般的に無痛性陰嚢腫大を契機に診断されることが多く, 腫瘍内に炎症や出血を生じる場合は痛みを伴う²⁾. 自験例は頻回に再発する陰嚢水腫が精巣腫瘍の診断の契機となった. 特に穿刺吸引後に触診を行うことと触診にて硬結を触れた場合は精巣腫瘍も念頭に置くことが重要と考えられた. 偶発的に陰嚢水腫を合併する精巣腫瘍は稀ではないが, 自験例のように細胞診陽性の陰嚢水腫を伴った精巣腫瘍はわれわれが調べた限りでは文献上の報告例は 3 例に留まる³⁻⁵⁾. 興味深いことに, これまで報告されている 3 例はすべてセミノーマであり, 非セミノーマとしての報告は自験例に限られる.

精巣腫瘍において陰嚢水腫内容物の細胞診が陽性になる機序として, 第 1 例目の報告者である Orecklin らは腫瘍の精巣鞘膜への直接浸潤や後腹膜リンパ節転移に伴うリンパ還流の障害などを指摘している³⁾. 後者は壁側鞘膜を裏打ちするリンパ管による鞘膜内漿液の再吸収機能を重視する観点であり, リンパ行性の腫瘍細胞の逆行性浸潤とこれに伴う鞘膜内漿液の還流障害が原因として推察されている. 本症例では後腹膜リンパ節転移はなく, 病理所見で鞘膜浸潤は認めなかった. 一方で精索浸潤を認めており, 後者と同様の機序で細胞診が陽性になった可能性が考えられる. ただし, 術前に陰嚢水腫の穿刺を複数回施行しており,

元々は良性の陰嚢水腫であったが穿刺吸引した際に腫瘍を穿刺したことにより細胞診陽性となった可能性は否定できない. ただ, この点については, 少なくとも今回の病理学的検討では陰嚢水腫壁の播種病変は検出されなかった. 初回陰嚢水腫穿刺時に水腫内容の細胞診を提出していれば早期診断につながっていたかもしれない. 現在のところ, 症例数が限られているために陰嚢水腫内容に腫瘍細胞が検出された症例の局所再発や予後について言及することは難しい. 過去の報告例で臨床像の詳細が明らかな 2 例は, いずれも後腹膜リンパ節転移例であるが長期予後についての記載はない^{3,4)}.

以上のように精巣胚細胞腫での報告例は少ないが, 陰嚢水腫を伴う悪性腫瘍では精巣鞘膜に発生する悪性中皮腫が鑑別疾患として重要である⁶⁾. 稀な腫瘍であるが約 6 割の症例が陰嚢水腫の術前診断で手術され, 初回手術の術式が明らかな症例の約 25% が陰嚢水腫根治術であったとされている. この場合, 追加手術が行われなかった症例の局所再発率は 36% であり, 精巣摘除術の局所再発率 (約 10%) に比べ高率であることが知られている⁶⁾. 悪性中皮腫においても内容物の細胞診陽性率は低く 9 例中 7 例が陰性であったとされているが, アスベストへの曝露歴と細胞診所見が正確な術前診断の契機となったとする報告もある^{6,7)}. また, 稀ではあるが悪性中皮腫以外の固形癌からの転移性精巣腫瘍でも陰嚢水腫を合併したとする報告が散見される^{8,9)}. 転移性精巣腫瘍の原発巣に関しては原疾患としては Dutt らが 94 例を集計し, 前立腺癌が最多で 25 例, 肺癌 (24 例), 大腸癌 (11 例), 胃癌 (8 例) などがこれに続くとしている¹⁰⁾. 興味深いことに前立腺癌, 肺癌の精巣転移で陰嚢水腫を合併した症例の報告はきわめて稀であり¹¹⁾, 消化器癌の報告が目立つ^{8,9)}. 原発巣別の陰嚢水腫の合併率は明らかでないが, Price らは 38 例の転移性精巣腫瘍の 7 例 (18%) に陰嚢水腫を認めたと報告している¹²⁾. 以上より通常の陰嚢水腫では説明しにくいほど短期間に再貯留する陰嚢水腫では, これらの悪性疾患の可能性についても考慮する必要があると考えられる.

自験例は 22 年の間隔を経て発生した異時性両側精巣腫瘍である. 本邦における異時性に発症した両側精巣腫瘍の報告例は 2015 年に 梶井ら¹³⁾ が 200 例について臨床的検討を行っており, 発生間隔は 2 年以内が 52 例 (26.9%), 5 年以内が 101 例 (52.3%), 5 年以降が 92 例 (47.7%), 10 年以降が 37 例 (19.2%) であった. 長期にわたる対側の自己触診が重要であることを示唆している. 両側性精巣腫瘍では妊孕性や性機能温存について十分議論する必要がある. 術前の精子保存や精巣部分切除術, テストステロン補充が考慮される. 精巣部分切除術の適応は, ①局在性で精巣網への浸潤が

ないこと, ②最大径 20 mm 以下, ③術前テストステロン値が基準値範囲内であることとされる¹⁴⁾. 患者にはすでに2人の子供がおり, 挙児希望もなかったため精子保存や精巣部分切除術は行わなかった. テストステロン補充については骨粗鬆症などの問題も含めて説明したが現時点では希望されなかった. 今後, 男性ホルモン退縮による症状が顕著になった場合はテストステロン補充を検討している.

結 語

陰嚢水腫を契機に発見された異時性精巣腫瘍の1例を経験した. 本症例では陰嚢水腫内容物の細胞診が陽性になった機序は不明だが, 再貯留の早い陰嚢水腫は精巣腫瘍や悪性中皮腫や転移性精巣腫瘍も念頭に置く必要があると考えられた.

文 献

- 1) 吉野干城, 森山浩之, 米原修治: 異時性両側精巣癌の1例. 泌尿紀要 **58**: 523-526, 2012
- 2) 日本泌尿器科学会編: 精巣腫瘍ガイドライン2009年版, 金原出版
- 3) Orecklin JR: Testicular tumor: Occurring with hydrocele and positive cytologic fluid. Urology **3**: 232-234, 1974
- 4) Roy CR and Peterson NE: Positive hydrocele cytology accompanying testis seminoma. Urology **39**: 292-293. Review, 1992
- 5) Llarena Ibarguren R, Zabala Egurrola JA, Arruza Echebarria A, et al.: Cytology positive for malignant cells in hydrocele secondary to testicular seminoma. Arch Esp Urol **47**: 71-72, 1994
- 6) Plas E, Riedl CR and Pflüger H: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: review of the literature and assessment of prognostic parameters. Cancer **15**: 83: 2437-2446, 1998
- 7) Japko L, Horta AA, Schreiber K, et al.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: report of first case with preoperative diagnosis. Cancer **49**: 119-127, 1982
- 8) Gillen S, Feith M, Gertler R, et al.: Testicular metastasis from adenocarcinoma of the esophagus. Ann Thorac Surg **87**: 957-959, 2009
- 9) Charles W, Joseph G, Hunis B, et al.: Metastatic colon cancer to the testicle presenting as testicular hydrocele. J Clin Oncol **23**: 5256-5257, 2005
- 10) Dutt NI, Bates AW and Baithun SI: Secondary neoplasms of the male genital tract with different patterns of involvement in adults and children. Histopathology **37**: 323-331, 2000
- 11) Gupta S, Mehta A and Kaur J: Advanced prostate cancer presenting as bilateral testicular hydrocele. Indian J Cancer **52**: 264-265, 2015
- 12) Price EB Jr and Mostofi FK: Secondary carcinoma of the testis. Cancer **10**: 592-595, 1957
- 13) 梶井成彦, 田中峻希, 川村貞文, ほか: 異時性に発症した両側精巣癌の3例. 日泌尿会誌 **106**: 199-205, 2015
- 14) Heidenreich A, Bonfig R, Derschum W, et al.: A conservative approach to bilateral testicular germ cell tumors. J Urol **153**: 10-13, 1995

(Received on September 1, 2016)

(Accepted on November 4, 2016)