

動静脈奇形を伴ったセルトリ細胞腫の1例

佐々木光晴*, 太田 章三

仙台赤十字病院泌尿器科

A CASE OF SERTOLI CELL TUMOR WITH ARTERIOVENOUS MALFORMATION

Mitsuharu SASAKI and Syozou OTA

The Department of Urology, Japanese Red Cross Sendai Hospital

A 56-year-old man was admitted to our hospital with a chief complaint of pain in the right scrotum. On examination, the patient showed neither gynecomastia nor superficial lymphadenopathy. The serum levels of α -fetoprotein, human chorionic gonadotropin- β , and lactate dehydrogenase (LDH) were not elevated. Ultrasonography and computed tomography (CT) demonstrated hematoma and testicular tumor with abundant blood flow in the right testis. CT revealed no evidence of retroperitoneal lymph node enlargement or distant metastasis. Radical orchiectomy was performed under a diagnosis of right testicular tumor. Histological analysis of the lesion indicated a Sertoli cell tumor. The patient is currently well, with no signs of either recurrence or metastasis about 8 months after the operation.

(Hinyokika Kiyo 56 : 55-58, 2010)

Key words : Sertoli cell tumor, Sex cord stromal tumor, Testicular tumor

緒 言

セルトリ細胞腫は精巣腫瘍の中でも約1%を占めるにすぎない稀な疾患である。

今回、われわれは有痛性の陰嚢腫脹を契機に来院され、精索内の精巣動静脈の著明な拡張と、精巣周囲に血腫をともなったセルトリ細胞腫を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者 : 56歳, 男性

主訴 : 右陰嚢痛

既往歴・家族歴 : 特記すべき事項なし

現病歴 : 20歳頃より精巣の左右差を自覚していた。10年位前より、右陰嚢腫大が目立ってきた。2007年12月、忘年会にて温泉施設に宿泊している折、入浴時に陰嚢を洗浄中、右睾丸を強く握ってしまった。その後同部の痛みが増強したため当院救急外来を受診した。

初診時現症 : 右精巣に弾性硬、超鶏卵大の腫瘤を触知した。左精巣は正常で、表在リンパ節を触知せず、女性化乳房も認めなかった。

検査所見 : Hb 13.1 g/dl と軽度の貧血を認めたが、その他の血算値、CRP、生化学検査値に異常は認めなかった。腫瘍マーカーも AFP 3.0 ng/ml, β -HCG < 0.1 ng, HCG 0.4 mIU/ml, LDH 147 IU/l といずれも正常値であった。

画像所見 : 精巣の超音波検査 (Fig. 1) では、精索内の精巣動静脈の著明な拡張と血流の充進を認め、陰嚢のほとんどは血腫で占められていた。中心部には血流豊富な腫瘍、その背側に正常な右精巣部分を認めた。CT 検査 (Fig. 2) では、陰嚢右側に 4 cm を越す腫瘍を認め、造影早期相で動脈と同程度の濃染を示している。また腫瘍の背側には血腫を認め、精巣静脈は静脈瘤状に高度に拡張し、腫瘍内シャントの可能性が示唆された。MRI 検査 (Fig. 3) でも同様の所見で、陰嚢右側に 48×45×43 mm の腫瘍、またその左側に血腫を認め、腫瘍の尾背側には T2WI で左精巣と同程度の高信号領域を認める右精巣が認められた。

入院時現症 : 身長 168 cm, 体重 55 kg, 理学的・神経学的異常所見を認めなかった。

治療経過 : 右精巣腫瘍を疑い、同年12月25日、腰椎麻酔下に右高位精巣摘除術を施行した。

肉眼所見 : 右精巣中央部に腫瘍を認めた。

精巣静脈は拡張し、周囲に血管網が増生していた。腫瘍は比較的容易に脱転され、表面は平滑、断面は黄白色で均一、内部充実性の腫瘍で出血・壊死を認めなかった (Fig. 4)。

病理組織学的所見 : 明るく幅広い胞体で円く小型で異型の乏しい核を有する腫瘍細胞が、索状胞巣を形成して増生していた。腫瘍は全体として周囲既存組織に対して圧排性に増殖し、線維性被膜に覆われていた。免疫組織化学染色では、CAM5.2, AE1/AE3, CD10に陽性で PLAP, calretinin, CD99, inhibin A には陰性であった。以上より、病理組織学的にセルトリ細胞腫

* 現 : 東北大学大学院医学系研究科泌尿器科学分野

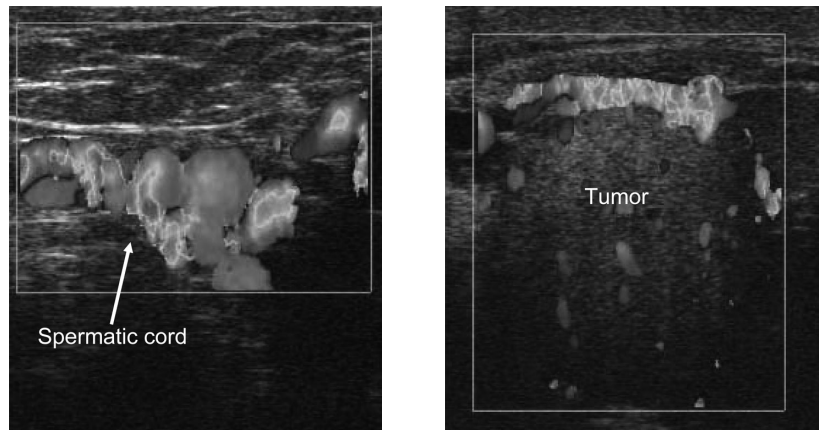


Fig. 1. Ultrasonography demonstrated testicular tumor with abundant blood flow in the right testis.

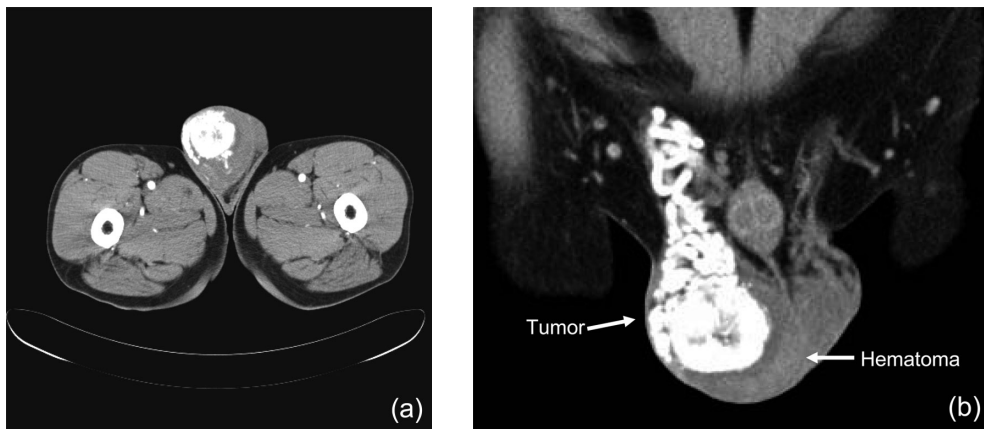


Fig. 2. Enhanced CT scans shows arteriovenous malformation.

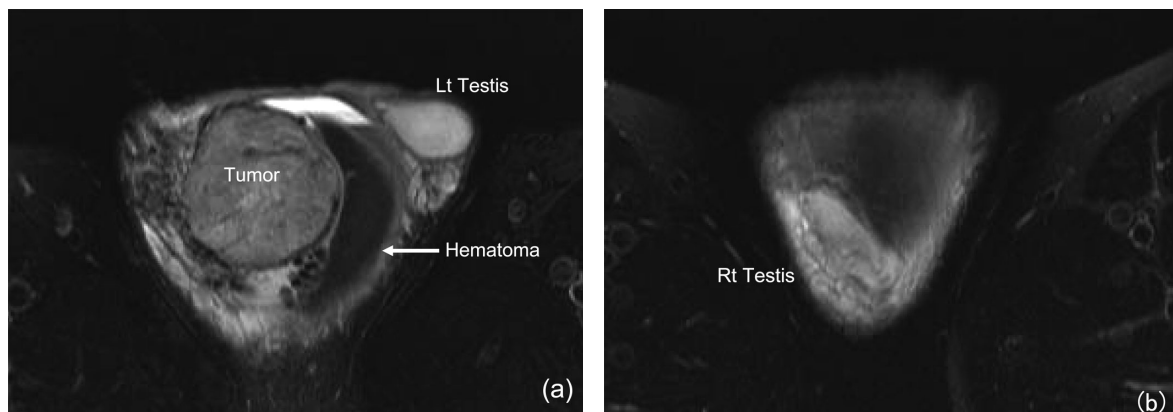


Fig. 3. Magnetic resonance imaging showed hematoma, testicular tumor and right testis in the right scrotum.

と診断された (Fig. 5).

術後8カ月を経た現在、再発、転移なく外来で経過観察中である。

考 察

セルトリ細胞腫は稀な疾患で、全精巣腫瘍の1%以下、悪性はその約10%とされている¹⁾。

本邦では、すでに湯浅ら²⁾が18例報告しており、そ

の後の症例報告は自験例も含め、46例認めた。主訴の多くは無痛性陰嚢内腫瘍であるが、有痛性も本症例を含め5例報告されている(10.9%)。文献的には女性化乳房が約3分の1の症例に認められ、発症年齢が12歳以下の症例も約3分の1とされていたが¹⁾、本邦報告例では、女性化乳房、12歳以下の発症についてはおのおの3例で6.5%にすぎなかった。Youngらの報告³⁾によると女性化乳房については過去の古い症例で

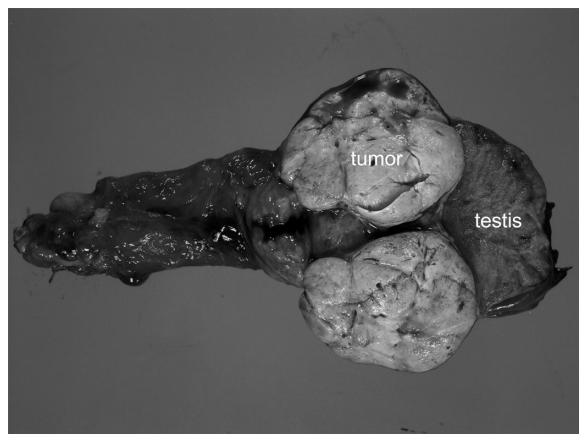


Fig. 4. Gross appearance of the right testis. The tumor was yellow-white and well defined.

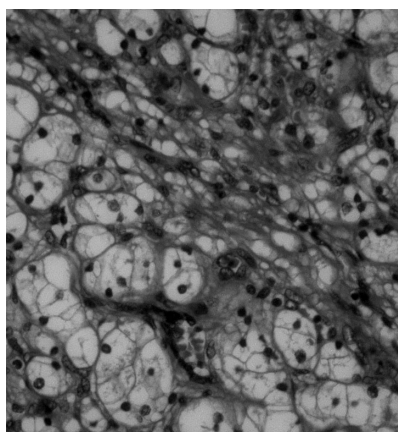


Fig. 5. Microscopic appearance of the Sertoli cell tumor (HE stain $\times 400$).

は若年性顆粒膜細胞腫などで女性化を伴った症例が混在しており、実際にはそれほど多くないと述べてられている。また若年発症についても、異なった性索/間質腫瘍が混在している可能性を指摘していた。

現在のところ特異的腫瘍マーカーは存在せず、血液検査、CT検査、MRI検査においても特異的な所見がないため、他の精巣腫瘍と術前に鑑別することは困難である。

セルトリ細胞腫は、組織学的にはセルトリ細胞類似細胞からなり、管状あるいは索状構造を呈する。胞体は好酸性の場合と、淡明で脂質陽性の場合がある⁴⁾。鑑別が困難な場合は、免疫組織化学染色が有効で、文献的には inhibin A, cytokeratin, vimentin が陽性、PLAP, AFP, hCG- β , CEAなどは陰性とされている⁵⁾が、本症例ではCAM5.2, AE1/AE3, CD10では陽性であったが、PLAP, calretinin, CD99, inhibin Aは陰性であった。組織学的形態により最も症例の多い general type と、間質に強い硝子化あるいは石灰化を伴い、結節性硬化症、Peutz-Jeghers 症候群、Carney 症候群など遺伝性疾患の合併を約40%に認める large cell calcifying type⁶⁾、そして硬化像が強く malignant

potential の低いとされている sclerosing type⁷⁾ の2亜型に分類されている⁴⁾。本邦報告46例では、general type 41例、large cell calcifying type 3例、sclerosing type 2例である。

悪性の診断において Young ら³⁾は、①直径5 cm以上、②壊死像、③grade 2 または3の核異型像、④脈管侵襲像、⑤400倍強拡大での10視野中5個以上の核分裂像の存在をあげている。この基準は悪性の指標として広く使用されているが、確定的なものではないため、悪性の診断は転移の有無によってなされている。本邦報告例では17例(36%)が組織学的に悪性と診断され、転移は9例(19%)に認めた。

治療としては、腫瘍核出術を施行した2例を除き全例高位精巣摘除術が施行されている。腫瘍核出術を施行した2例の内1例は、後日再発が疑われ高位精巣摘除術を施行している。この症例については病理学的には再発ではなく出血性梗塞であった⁸⁾。一般にセルトリ細胞腫は組織像から良悪性を判断することは難しいため、腫瘍核出術については、適応についての慎重な検討と、十分なインフォームドコンセントを行い、危険性について十分に納得していただいた上で行うべきと考える。転移のある悪性症例では RPLND、化学療法、放射線療法の必要性が説明されているが、いずれの治療法を選択しても、予後はきわめて不良である。

「動静脈の奇形」と「精巣腫瘍」の関連性については、国内外を含め、両者を併発した症例の報告は認めていない。右側の精巣静脈の拡張であることや、CT検査の造影早期相(動脈相)で、瘤状に拡張した精巣静脈が造影されていることから、動静脈の奇形が最も疑われた。摘出した精巣腫瘍の病理組織診断では、動静脈奇形やうっ血、血管の増生などの所見は認めず、腫瘍が、周囲組織に対して圧排性に増殖し、線維性被膜に覆われていることから、腫瘍の増大によって先天的にあった動静脈奇形が顕在化したものと推測された。組織学的には悪性所見もなく、転移も認めなかったことから、本症例は良性と診断したが、転移の有無が唯一の悪性診断となることを考えると、今後もCT検査を行うなど、厳重なる経過観察が必要としていく予定である。

結 語

セルトリ細胞腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

なお本論文の要旨は第73回日本泌尿器科学会東部総会にて発表した。

文 献

- 1) Richie JP: Neoplasm of testis. In Campbell's

- Urology. Edited by Wein AJ, Kavoussi LR, et al. 9th ed, 925-928, WB Saunders Company, Philadelphia, 2007
- 2) 湯浅譲治, 長山忠雄, 鈴木拓悦, ほか: セルトリ細胞腫の1例. 泌尿紀要 **45**: 501-504, 1999
 - 3) Young RH, Koelliker DD, Scully RE, et al.: Sertoli cell tumor of the testis, not otherwise specified. a clinicopathologic analysis of 60 cases. Am J Surg Pathol **22**: 709-721, 1998
 - 4) 日本泌尿器科学会, 日本病理学会編: 精巣腫瘍取り扱い規約 (第3版) 金原出版, 東京, 2005
 - 5) Anderson GA: Sclerosing sertoli cell tumor of the testis: a distinct histological subtype. J Urol **154**: 1756-1758, 1995
 - 6) 加藤祐司, 川上憲裕, 藤井敬三, ほか: セルトリ細胞腫の1例. 泌尿紀要 **47**: 857-860, 2001
 - 7) 宮田友子, 佐々直人, 市橋亮一, ほか: 悪性大細胞性石灰化セルトリ細胞腫の1例. 現代医 **55**: 539-542, 2008
 - 8) 中嶋 孝, 松木孝和, 藤井智浩, ほか: セルトリ細胞腫の1例. 西日泌尿 **62**: 302-304, 2000

(Received on March 19, 2009)

(Accepted on July 24, 2009)