

精索脂肪肉腫の1例

—本邦症例の検討を加えて—

吉野 干城¹, 和氣 功治¹, 山本 智彦²

大沼 秀行², 川上 一雄¹

¹島根県立中央病院泌尿器科, ²島根県立中央病院病理組織診断科

LIPOSARCOMA OF THE SPERMATIC CORD: A CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

Tateki YOSHINO¹, Koji WAKE¹, Tomohiko YAMAMOTO²,
Hideyuki ONUMA² and Kazuo KAWAKAMI¹

¹The Department of Urology, Shimane Prefectural Central Hospital

²The Department of Pathology, Shimane Prefectural Central Hospital

A 92-year-old man had noticed enlargement of a mass in the right scrotum and inguinal region for nine months. The patient was introduced to our department for right testicular tumor. Physical examination showed an over fist-sized, hard mass in the right scrotum. Magnetic resonance imaging (MRI) showed the mass, which consisted of fatty and solid contents. In addition, MRI revealed a bladder tumor simultaneously. Computed tomography revealed no distant metastases. The patient underwent right high orchiectomy with the mass resection and transurethral resection of the bladder tumor (TURBT). Pathological examination revealed well- and dedifferentiated liposarcoma of the right spermatic cord, and urothelial cancer of the bladder. Liposarcoma of the spermatic cord is a rare neoplasm. To the best of our knowledge, the present case was the 114 th reported case and oldest in Japan.

(Hinyokika Kiyo 62 : 393-397, 2016 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_62_7_393)

Key words : Spermatic cord, Liposarcoma

緒 言

精索, 陰嚢内に発生する脂肪肉腫は比較的稀な疾患である。

今回, 膀胱癌と同時に診断した精索原発の脱分化型脂肪肉腫の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 : 92歳, 男性。

主 訴 : 無痛性右陰嚢腫大。

既往歴 : 高血圧, 狭心症, 脂質異常症に対して近医で内服加療中。

家族歴 : 特記事項なし。

現病歴 : 9カ月前頃より右陰嚢腫大を自覚していた。増大を認めるため, 近医を受診。右精巣腫瘍疑いにて当院へ紹介となった。当科初診日より1週間後に肉眼的血尿と不完全尿閉を認め, 尿道カテーテルを留置した。

現 症 : 右陰嚢から鼠径部にかけて超手拳大の腫大硬結を認めた。同腫瘍に圧痛はなかった。身長 159 cm, 体重 64 kg, 血圧 148/90 mmHg, 脈拍 88/分・整,

体温 36.5°C。胸腹部には特記すべき異常所見なし。表在リンパ節は触知せず。自立歩行は可能で意思疎通に大きな問題はみられなかった。

初診時検査所見 : 末梢血液検査および血液生化学検査では Hb : 12.7 g/dl, Cr : 1.07 mg/dl, BUN : 23.3 mg/dl と軽度の貧血および腎機能低下を認めた。尿検査では, RBC 50~99/hpf, WBC 30~49/hpf と血膿尿を観察した。腫瘍マーカーに関しては LDH : 211 U/l, AFP : 3.4 ng/ml, HCG-β : 0.1 ng/ml 未満と基準値範囲内であった。のちに提出した尿細胞診は偽陽性だった。

腹部単純 CT 検査所見 : 右陰嚢から鼠径部に 10×8×15 cm 大の分葉状腫瘍を認め, 同腫瘍は脂肪および筋肉と同程度の density の混在が観察された。明らかな遠隔転移所見は観察されなかったが, 膀胱右側壁に一部石灰化を伴う 15 mm 大の腫瘍が疑われた。

造影 MRI 検査所見 (Fig. 1) : 腫瘍内の外側部分は多房性で T1 および T2 強調像ともに high intensity を示し, 脂肪成分の存在が示唆された。腫瘍内内側の充実性部分は多発結節状であり, T1, T2 強調像にて iso~low intensity で全体に造影効果を認めた。右精巣は腫瘍に圧排されるように陰嚢底部に存在し, 明らか

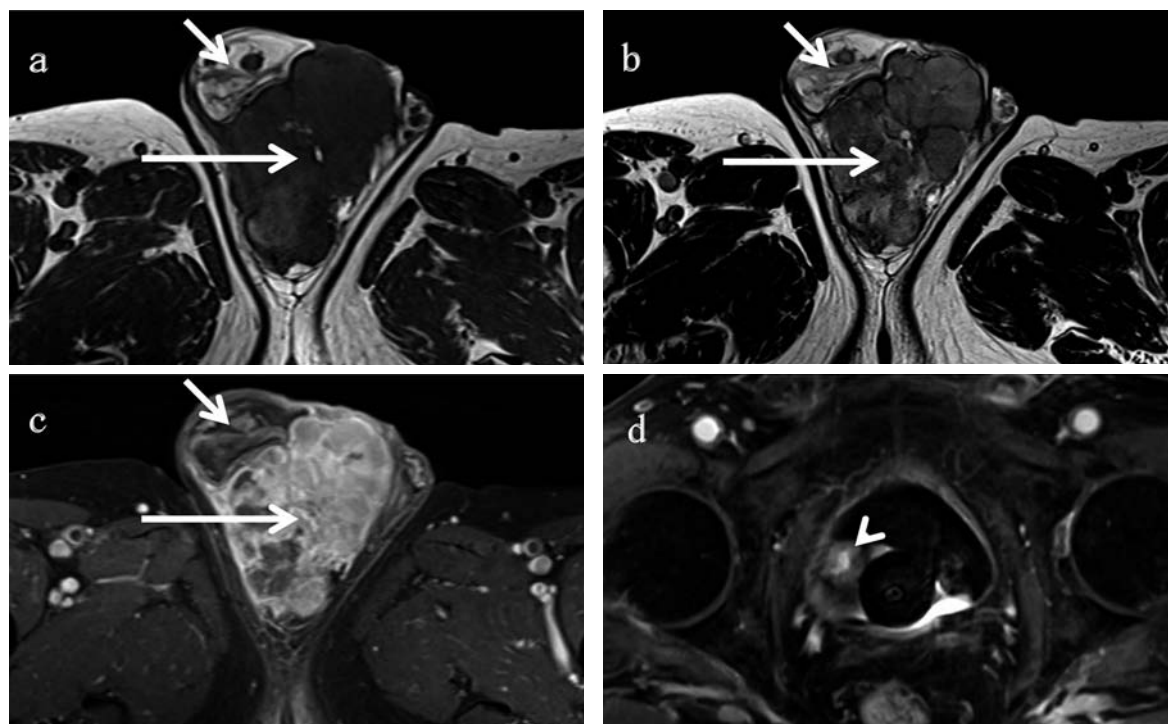


Fig. 1. MRI findings (axial) of the right scrotum and urinary bladder (a: T1-weighted image, b: T2-weighted image, c, d: enhanced T1-weighted image). The mass consisted of two contents. Lateral (short arrow) content of the mass was high-intensity mass on T1- and T2-weighted image. Medial content (long arrow) of the mass was low- and iso-intensity mass on T1- and T2-weighted image, respectively. Enhancement was identified in the medial content. In addition, MRI showed a 19 mm mass (arrow head) in the right lateral wall of the urinary bladder.

な異常はみられなかった。膀胱右側壁に 19 mm 大の有茎性腫瘤および周囲に血塊付着所見を認めた。明らかな筋層断裂所見はなかった。

膀胱鏡検査所見：血塊のため、十分な観察は不可であった。

治療経過：脂肪成分を含んだ右陰嚢内腫瘍もしくは右精索腫瘍の診断のもと、精索、腫瘍および精巣の一塊摘除を目的とした右高位精巣摘除術ならびに TURBT を実施した。右鼠径部から陰嚢上部に至る皮膚切開をおいた。精索周囲の脂肪は硬く、外鼠径輪レベルで精索を確保した。鼠径管前壁を開放し、周囲組織をできるだけ精索につけるような層で中枢に向かって剥離した。正常な精索と思しき部位よりもさらに中枢側で、内鼠径輪より後腹膜の脂肪が視認できるレベルで精索を離断。陰嚢側はさらに周囲組織との癒着が強かったが鈍的鋭的剥離を行い、一塊に摘出した。引き続き TURBT を実施した。右側壁に 2 cm 大の乳頭状腫瘍、周囲の乳頭状変化を切除した。

病理組織学的検査所見：摘出組織重量は 240 g で腫瘤サイズは 12×5.5×13 cm 大であった。腫瘤剖面は黄色調の脂肪成分様の部分と灰白色の分葉状充実性部分より成っていた (Fig. 2)。黄色調の部分では、大小不同の顕著な脂肪細胞がみられ、これはクロマチンに

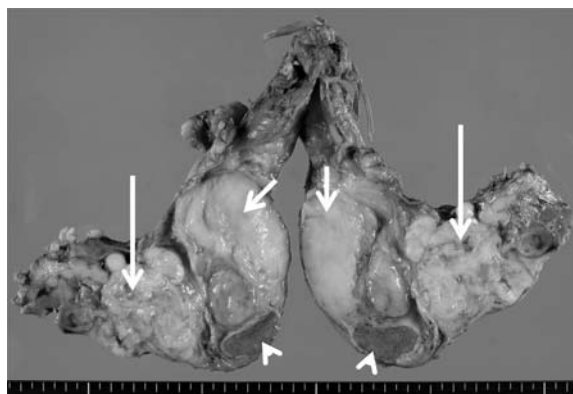


Fig. 2. The cut surface of the surgical specimen (formalin fixed) showed that the mass consisted of fatty elements (short arrow) and solid elements (long arrow). Right testis (arrow head) was compressed by the mass.

富む異型核を有することより高分化型脂肪肉腫と診断された。充実性部分では、脂肪成分を含まず、異型を示す紡錘形細胞が錯綜配列しつつ増殖する像が認められ、脱分化型脂肪肉腫と診断された (Fig. 3)。中枢側の精索切除断端には高分化型脂肪肉腫のわずかな存在が確認され、切除断端は陽性だった。右精巣に特記すべき異常はみられなかった。膀胱腫瘍は尿路上皮癌、G2, pT1 の結果であった。

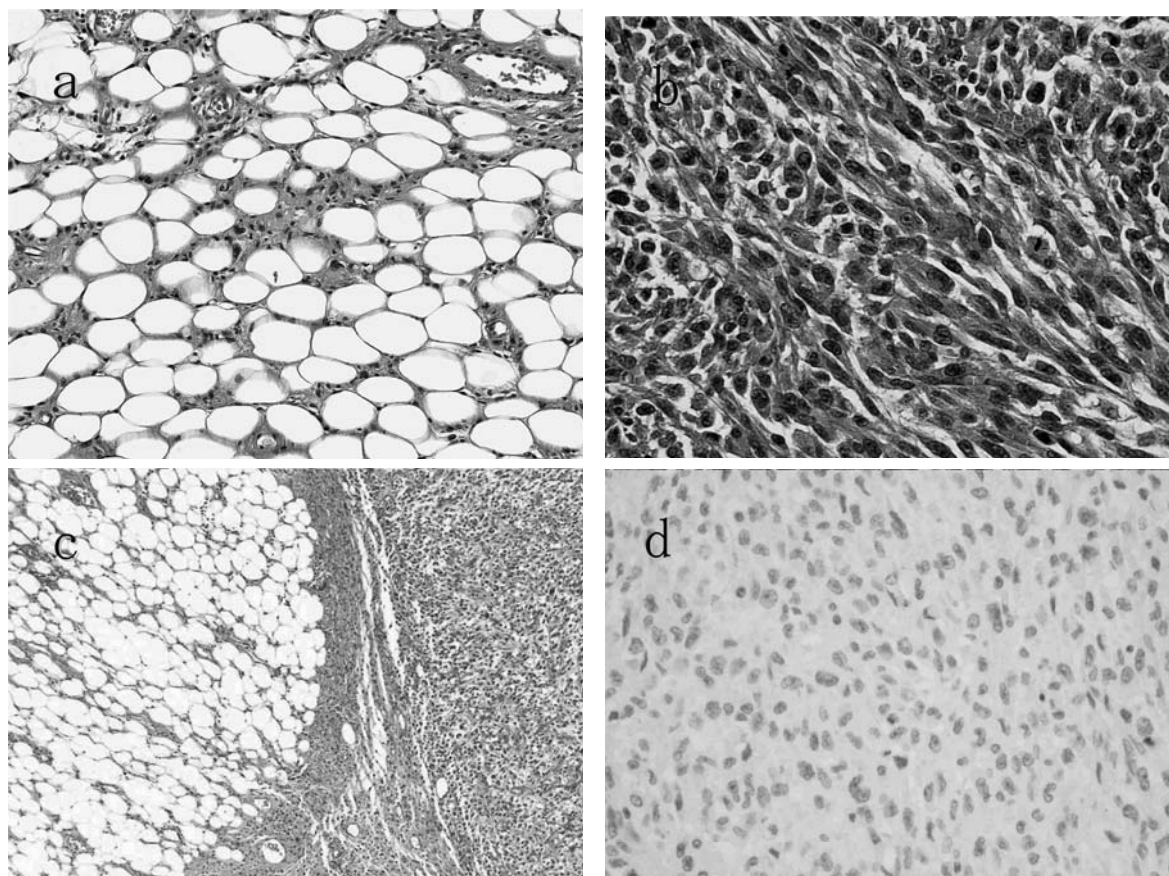


Fig. 3. Microscopic appearance of the tumor (a; $\times 200$, b; $\times 400$, c; $\times 40$, d; $\times 400$) showed a well-differentiated liposarcoma with irregular sized fat cells and lipoblasts (a, c; left half) and a dedifferentiated liposarcoma with spindle cells having atypical highly multiplied nuclei (b, c; right half). Positive nuclear expression of MDM2 was identified in the tumor cells (d).

治療後経過：切除断端陽性であること、脂肪肉腫は確立した補助療法がないことより追加切除を提示したが、超高齢などの背景もあり、経過観察を希望された。Second TURBT についても実施の希望がなく、フォローアップのみを行っている。術後8カ月の時点では再発転移を認めていない。

考 察

脂肪肉腫は日本の成人軟部肉腫の20%を占める最も頻度の高い軟部肉腫の1つであり¹⁾、発生部位としては四肢に最多で、次いで後腹膜、体幹に発生する²⁾。そのうち精索原発のものは脂肪肉腫全体の3～7%と低頻度である³⁾。

本邦においては、折居ら⁴⁾が1965年に精索脂肪肉腫

Table 1. Reported cases of liposarcoma of the spermatic cord from Japan including the present case since 2011

Case no	報告年	報告者	年齢	患側	治療	組織重量 (g)	切除断端	病理組織診断	観察期間	再発
1	2011	中尾 ⁶⁾	61	右	高位精巣摘除術	不明	不明	高分化型	6年6カ月	6年目に右骨盤内再発で切除。その後6カ月再発なし
2	2012	大畠 ⁷⁾	50代	左	高位精巣摘除術	不明	陽性（追加切除あり）	脱分化型	3年	なし
3	2013	重松 ⁸⁾	60	右	高位精巣摘除術	152	陰性	粘液型	2年	なし
4	2013	森 ⁹⁾	70	左	高位精巣摘除術	280	陰性	高分化型	7カ月	なし
5	2013	Okano ¹⁰⁾	70	右	高位精巣摘除術	不明	不明	脱分化型	不明	不明
6	2015	河野 ¹¹⁾	72	左	高位精巣摘除術	不明	陽性（追加切除なし）	高分化型	9カ月	なし
7	2016	自験例	92	右	高位精巣摘除術	240	陽性（追加切除なし）	脱分化型	8カ月	なし

の第1例目を報告している。2010年上原ら⁵⁾の107例の集計以後、6例の論文報告 (Table 1)^{6~11)}があり、自験例は114例目であった。これらの本邦報告例について検討したところ、主訴は全例で鼠径部もしくは陰嚢の腫大で、3例が有痛性、ほか111例は無痛性だった。年齢は17~92歳 (平均63.0歳) であり、自験例は本邦最高齢の報告であった。特に50~70歳台が全体の82%を占め、多くみられた。患側は左61例、右47例と左に多い傾向であった。また、摘出組織重量は2.3~5,700 g と大きな幅があった。

脂肪肉腫の病理組織学的分類は、一般的には WHO 分類¹²⁾が使用されており、精索脂肪肉腫において組織型の症例数順に挙げると高分化型が64例と最多で、次いで混合型12例、粘液型12例、脱分化型10例、多形型2例であった。しかし、最近、WHO 分類¹³⁾が改訂され、これによると高分化型、脱分化型、粘液型、多形型および分類不能型に分けられ、今後はこの分類が適用されるものと思われる。分類組織型は脂肪肉腫の予後に最も影響する因子と考えられており、5年生存率に関して、比較的良好な高分化型、粘液型においておのおの85、77%であり、その他の組織型は約20%との報告がある¹⁴⁾。

治療法は手術療法が第一選択であり、周囲軟部組織を含めた高位精巣摘除術を行い、切除断端陰性をえることが重要である¹⁵⁾。本邦では全例で手術療法が施行されており、腫瘍組織とその周囲の正常組織を一塊とした摘除術が多く行われていた。自験例では、中枢側の精索切除断端にわずかな高分化型脂肪肉腫を認め、断端陽性であったが、超高齢などを背景に追加切除や追加治療を希望されず、経過観察を行っている。

再発および転移に関しては局所再発が多く、遠隔転移は稀とされている。転移様式は血行性転移が多く、標準的なリンパ節郭清の意義は確立されていない¹⁶⁾。調べた限りで報告時にリンパ節転移を来した症例はなく、遠隔転移を認めたのは脱分化型の1例のみであった¹⁷⁾。その転移部位は、肺および脊椎であり、骨軟部肉腫の報告¹⁸⁾においても粘液型以外は肺が初発転移部位として多い傾向が示されている。

補助療法としては放射線療法21例、化学療法11例、化学放射線療法が1例に実施されていた。切除断端陽性症例に対して術後放射線療法を推奨する報告¹⁵⁾もあるが、症例数が少なく、有効性を十分に評価できていないのが現状である。化学療法に関しては、1975年に CYVADIC (cyclophosphamide, vincristine, doxorubicin, dacarbazine) 療法が報告¹⁹⁾され、軟部肉腫に対して広く用いられてきたが、奏効率は20~30%であった²⁰⁾。その後、1989年に MAID (doxorubicin, ifosfamide, dacarbazine) 療法が報告²¹⁾され、単施設のデータで47%の奏効率が示されている。しかしなが

ら、本邦での十分なエビデンスに基づく化学療法ガイドラインは存在しないのが現状である。

本疾患の再発に関する本邦報告例は12例あり、再発部位は2例が後腹膜再発である以外は局所再発であった。これらの後腹膜再発も局所再発からの進展の可能性が示唆されており、局所の初回治療の重要性が伺われる。初回治療から1回目再発までの期間は2カ月~10年 (平均4.6年) と一定の傾向はみられず、比較的長期にわたる経過観察が必要と考えられた。前述したように精索脂肪肉腫の再発様式は、局所再発が大多数であり、有効な補助療法が確立されていないのが現状である。本症例では再発がみられた際に積極的治療を希望され、身体状況が許せば、再発部位の外科的摘除による対応を考えたい。

自験例は本邦最高齢であり、80歳以上の超高齢者に限ると自験例を含め、8例の報告がある。超高齢者における本疾患の臨床的特徴に関して組織型において高分化型が6例と多く、粘液型と脱分化型が各1例であった。そのほかには特徴的所見を見出しえなかった。今回、われわれは90歳を超える超高齢者に対して手術加療を実施したが、この理由として performance status が良好であり、術前検査結果も含め耐術と判断したからである。しかし、客観的な基準に基づいて実施の有無を決めたわけではない。加齢に伴う脆弱性は個体差が大きいとされ、超高齢者でも標準治療を導入できるかどうかはリスク評価や治療法の強度により決定されるべきという意見もある²²⁾。高齢者総合的機能評価のための G8²³⁾などのツールが示されており、特に超高齢者の癌診療においてはリスクベネフィットを十分に検討することが重要と考えられる。

結 語

膀胱癌と同時に診断した精索原発の脱分化型脂肪肉腫の1例を経験し、本邦報告114例について文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、第122回日本泌尿器科学会山陰地方会において報告した。

文 献

- 1) 山口 洋, 長谷川 匡: 軟部肉腫の病理診断と治療。癌と化療 **31**: 1340-1345, 2004
- 2) Enzinger FM and Weiss SW: Soft tissue tumors 3rd Edition pp 431-466, The CV Mosby, St Louis, 1995
- 3) Schwarts SL, Swieczewski SJ, Sondak VK, et al.: Liposarcoma of the spermatic cord. J Urol **153**: 154-157, 1995
- 4) 折居俊夫, 笹野伸昭, 佐藤 進, ほか: 精索脂肪肉腫の1例。癌の臨 **11**: 167-169, 1965
- 5) 上原 満, 武田 健, 鄭 則秀, ほか: 陰嚢水腫を契機に診断された精索脂肪肉腫の1例。泌尿紀

- 要 **56**: 127-129, 2010
- 6) 中尾 篤, 山田祐介, 東郷容和, ほか: 術後6年目に骨盤内再発を来した精索脂肪肉腫. 臨泌 **65**: 235-237, 2011
 - 7) 大畠 領, 小野孝司, 佐々木信之, ほか: 脱分化型脂肪肉腫の1例. 鳥取赤十字医誌 **21**: 9-11, 2012
 - 8) 重松慶紀, 栗村嘉昌, 角西雄一, ほか: 精索脂肪肉腫の1例. 広島病医誌 **45**: 39-42, 2013
 - 9) 森 聡博, 坪井 啓, 白崎義範, ほか: 鼠径ヘルニアとの鑑別に苦慮した精索脂肪肉腫の1例. 広島医 **66**: 576-579, 2013
 - 10) Okano S, Yamamoto H, Kono S, et al.: Dedifferentiated liposarcoma of the spermatic cord with a hemangioendothelioma-like component: a case report and review of the literature. *Pathol Res Pract* **209**: 596-604, 2013
 - 11) 河野 充, 阿部宏一, 船橋 亮, ほか: 精索原発脂肪肉腫の1例. 泌尿器外科 **28**: 1565-1568, 2015
 - 12) Fletcher CDM, Unni KK and Mertens F: World Health Organization Classification of Tumors: pathology and genetics of tumors of soft tissue and bone, IARC Press, Lyon, 2002
 - 13) Fletcher CDM, Brigde JA, Hogendoorn PCW and Mertens F: World Health Organization Classification of Tumors: WHO classifications of tumors of soft tissue and bone, IARC Press, Lyon, 2013
 - 14) Enzinger FM and Winslow DJ: Liposarcoma: a study of 103 cases. *Virchows Arch A Pathol Anat* **335**: 367-388, 1962
 - 15) Ballo MT, Zagars GK, Pisters PW, et al.: Spermatic cord sarcoma: outcome, patterns of failure and management. *J Urol* **166**: 1306-1310, 2001
 - 16) Certo LM, Avetta L, Hanlon JT, et al.: Liposarcoma of spermatic cord. *Urology* **31**: 168-170, 1988
 - 17) 万代康弘, 内藤 稔, 羽藤真二, ほか: 右鼠径部に発生した脱分化型脂肪肉腫の1例. 日外科系連会誌 **33**: 704, 2008
 - 18) 生越 章, 堀田哲夫, 畠野宏史, ほか: 骨軟部肉腫の転移様式. 臨整外 **38**: 773-778, 2003
 - 19) Gottlieb JA, Baker LH, O' Bryant RM, et al.: Adriamycin (NSC-123127) used alone and in combination for soft tissue and bony sarcomas. *Cancer Chemother Rep* **6**: 271-282, 1975
 - 20) 小林英介, 川井 章: 骨・軟部組織に対する補助化学療法. 腫瘍内科 **2**: 510-516, 2008
 - 21) Elias A, Ryan L, Sulkes A, et al.: Response to mesna, doxorubicin, ifosfamide, and dacarbazine in 108 patients with metastatic and unresectable sarcoma and no prior chemotherapy. *J Clin Oncol* **7**: 1208-1216, 1989
 - 22) 長島文夫, 成毛大輔, 岡野尚弘, ほか: 超高齢者に対するがん治療—老年腫瘍学の観点から—. 泌尿器外科 **28**: 1739-1744, 2015
 - 23) Bellera CA, Rainfray M, Mathoulin-Pelissier S, et al.: Screening of older cancer patients: first evaluation of the G-8 geriatric screening tool. *Ann Oncol* **23**: 2166-2172, 2012

(Received on December 14, 2015)

(Accepted on March 30, 2016)