

脊髄に原発した性器外悪性絨毛上皮腫の1例

大阪労災病院泌尿器科（院長：小沢凱夫博士，部長：岩佐賢二博士）

栗 田 孝
岩 佐 賢 二
矢 野 久 雄PRIMARY EXTRAGENITAL CHORIOCARCINOMA IN SPINAL CORD :
REPORT OF A CASE

Takashi KURITA, Kenji IWASA and Hisao YANO

From the Department of Urology, Osaka Rosai Hospital

(Director : Dr. K. Iwasa)

A case of primary extragenital choriocarcinoma arisen in the spinal cord was reported.

A ten years old boy was first seen in December 1963 with complaints of pain and disturbance of gait, precocious puberty and disturbance of micturition. He was admitted to Rosai Hospital under a diagnosis of spinal tumor.

On May 6, 1964, the tumor was removed. Histological diagnosis was choriocarcinoma. Then, elevated gonadotropin in urine was estimated. He died on February 4, 1965.

At autopsy neither any tumor, cyst, nor scar formation was observed by the serial examination of the testes. This finding could support the diagnosis of primary choriocarcinoma of the spinal cord.

男子において原発性に性器外悪性絨毛上皮腫の発生をみることは、極めて稀である。我々はこの疾患で、脊髄に原発したと思われる症例を経験し、剖検する機会を得たので、ここに報告する。

症 例

尾陰 某 10才 男

家族歴，既往歴：特記する様なものはない，

主訴：下半身の疼痛，運動障害，および排尿困難。

現病歴：昭和38年12月頃より身長と体重の急増が目立ち，それと共に全身が毛深くなりまた，陰毛の発生を伴う外陰部の早期発育をも見る様になった。昭和39年3月始め頃より両側大腿，特に左側に強く膝部にまで発作性の疼痛があり，時には疼痛は左または右に偏在した。2～3の開業医にて神経痛として治療を受けていたが疼痛は軽減せず，3月下旬より次第に両下肢

の筋力の低下と排尿困難を覚える様になった。その後の腰痛，大腿痛は増悪し，歩行不能となり4月11日当院整形外科を訪れ，4月24日脊髄腫瘍の疑いで入院その後当科と共観となった。

入院時現症：栄養は中等度で体格は年令に比して大きく，体毛は濃く，陰毛，あごひげの発生を見る。胸腹部の臓器には異常所見を認めない。腰椎の生理的前弯は消失し，両側の股関節，膝関節は屈曲位をとる。起立および歩行は不能で下半身に知覚障害（知覚鈍麻）を認む。膝蓋腱反射は両側共に減弱，アキレス腱反射は消失している。外陰部の発育は早熟の傾向が強い。自然排尿は不能でカテーテルを留置している。

入院時検査成績：血液，赤血球404万，白血球5,100，白血球分類，好中球56%，好酸球2%，淋巴球49%，単球3%，血色素71%。

尿，蛋白（+），糖（-），沈渣，赤血球（±），白血球（++），上皮（±），円柱（+），細菌（+）。

その他，17KS 7.8mg/day，17 OHCS 6.1mg/day。

血圧, 130~70mmHg.

レ線検査：脊髄造影で、造影剤が L_{IV} の高さで完全に通過しない（第1図）。

腎盂膀胱レ線像では両側の尿管逆流現象を認め、両側共に腎盂腎炎の像を認めた。

入院後の経過：以上の所見より脊髄腫瘍を疑い、昭和40年5月6日整形外科により $L_I \sim L_{IV}$ の椎弓切除術を行ない腫瘍剔出術が施行された（第2図）。腫瘍は硬膜内腔内および硬膜内腔外にそれぞれ存在し、特に髄内腫瘍は暗赤色の外見を呈し、非常に出血し易く、完全な剔出は不可能であった。剔出した腫瘍は髄内に存在したのが悪性絨毛上皮腫で、髄外は神経線維腫であった（第3図）。その組織像は絨毛上皮を形成する合体細胞とラングハンス氏細胞とが基だ不規則に配列し増殖しており、出血巣も著明にみとめられる悪性度の強い典型的な像である（第4図）。術後自覚症状の一時的な寛解を見たが、7月始め頃より症状は更に増悪の傾向を示す様になった。術前に悪性絨毛上皮腫の診断が下せていなかったが、術後の尿中ゴナドトロピンを測定した所、6月には480単位（Rab. u. eq）と高く、腫瘍の完全な剔除の行なわれなかった事を示していた。この腫瘍が特に制癌剤に感受性を有する所からこの頃よりナイトロミン 0.3 mg/kg/日の投与を開始し総量 1,200 mg 投与時にはゴナドトロピンは 120 単位と幾分低下を示していた。しかし乍ら疼痛、運動障害は寛解せず、大量の鎮痛剤および麻薬を必要とする様になり、12月に入り意識混濁、痙攣発作を繰返し、40年1月4日死亡した。直ちに剖検を施行したが第5図は死亡当時の外見を示している（第5図）。特に原発巣のあると想像された睾丸組織は両側共全く正常で、連続切片による綿密な組織学的な検索にも拘らず何らの原発巣を思わせる像がなく、単に精子形成の低下と間質細胞の増殖を認めるのみであった（第6図）。

考 按

男子に悪性絨毛上皮腫の発生を見るのは、殆んどが睾丸腫瘍として報告され、その睾丸腫瘍の中でも頻度は決して高いものではなく Friedman and Moore (1946) の922例の報告中でも0.4%にすぎない。更に性器外原発と思われるこの腫瘍の発生は、極めて稀なものとして報告されているにすぎないが、悪性絨毛上皮腫自体は、その極めて悪性なこと及び血行性の転移を来し易い事で良く知られている疾患である。そこで、男子の性器外に原発したと思える症例に

関しては、原発性の確たる立証は睾丸組織の精査に待たねばならないものである。特に Prym (1927) 以来、転移により原発巣、即ち睾丸の腫瘍の自然消退が報告されているので、睾丸に小腫瘍の存在の他に、瘢痕乃至は小嚢胞の存在も重要な所見と云える。又 Riopelle (1948) の報告によれば原発巣が直径 1mm であつたと云われているので左右睾丸の連続切片も少なくともこの程度の可能性をも考慮して検索すべきである。本邦における原発性異所性の悪性絨毛上皮腫の男子の発生例の報告も、文献上散見されるが、記載が曖昧で原発か否かにわかに決定いたしかねる所である。比較的記載の明らかな症例については表に示した（第1表）。厳格な検

第 1 表

報告者	年代	年令	発生部位	辜 丸 所 見	そ の 他
山田等	1954	24	縦 隔	精子形成低下 間質細胞増殖	女性乳房 2次性の 原癌症か
森	1960	12	縦 隔	不 明	早 熟
内 田	1961	19	後腹膜	不 明	女性乳房
高橋・ 齊 藤	1961	30	後腹膜	精子形成低下 間質細胞増殖	女性乳房
	1961	33	後腹膜	精子形成低下 間質細胞増殖	
島野等	1963	18	縦 隔	精子形成像減退	17KS 正 常 Estro- gen 上昇 早 熟
栗田等	1965	10	脊 髄	精子形成低下 間質細胞増殖	Gonado- tropin 上 昇

索による原発性の症例は非常に少ない。一方外国の報告例を見ると、Fine et al. (1962) は自験例1例と共に文献上の蒐集を行なっているが、109例にのぼっている。更に睾丸の精査を行なって明らかに原発とみなしているのは17例、部位、組織や年令等について疑わしいものは23例計40例にすぎず、睾丸の精査を行なわなかったものが69例に達している。この統計を引用すれば部位としては縦隔の発生が多く、年令的には20才代に最も多く見られている（第2、3表）。

第2表 Reported extragenital choriocarcinomas according to location of primary lesion.

Primary site	Group A	Group Q	Group U	All groups
Mediastinum	8	10	35	53
Retroperitoneum	4	5	18	27
Abdominal viscera	2	0	10	12
Pelvic viscera	2	2	2	6
Intracranium	1	6	1	8
Lung	0	0	3	3
Totals	17	23	60	109

Fine et al. (1962)

第3表 Distribution of reported extragenital choriocarcinomas according to age.

Age (yr) by decade	Group A	Group Q	Group U	All groups
1 — 10	0	4	1	5
11 — 20	3	4	5	12
21 — 30	5	9	29	43
31 — 40	3	2	15	20
41 — 50	1	1	3	5
51 — 60	2	1	3	6
61 — 70	2	1	2	5
71 — 80	1	0	1	2
Not given	0	1	10	11
Totals	17	23	69	109

Fine et al. (1962)

本症例の如く脊髄に原発した症例の報告は見当らない。縦隔に最も多い事は Jernstrom and McLaughlin (1962) が 43 例の報告を行ない、胸腺より発生した奇形腫様の腫瘍であると述べているが、これは Friedman (1951) の説く胎児細胞の多能性という事に従ったものである。即ち Germinoma 又は Germ cell は Somatic 或は Trophoblastic な能力を有し、これが Trophoblastic な分化を示せば Choriocarcinoma となり、各要素の混在も多いという事である。本例も奇形腫における Chorionic component の非常に強いものでないかと考えられる。この腫瘍のホルモン活性、特にゴナドトロピンによる影響が顕著であることもよく知られた事実であるが、先の Fine らの統計でも女性乳房を来したものの 24 例、妊娠反応陽性 24 例を数

え、この間の密接な関係を述べている。ゴナドトロピンが 10 数例各種の方法で測定し、各々高値を示す事も述べられているが、本例の如く性的早熟を来したものは Van Hasselt (1913), Gerstley et al. (1940), Zondek et al. (1953) や森 (1960) の数例、それも松果体に発生したものにすぎなく、本例の如き症状を呈したのは甚だ特異的であると云える。

尚、睪丸の組織像では大部分が精子形成の低下、Leydig 細胞の増殖、精細管の基底膜の肥厚を示すもので、本症例の組織像も略々典型的な像であったと思われる。

結 語

10才の男子に見られた、性器外(脊髄)に原発した悪性絨毛上皮腫の1例を報告した。内外共に異所性の発生の報告を文献上散見するが、脊髄原発の報告は見当らず、貴重な1例であると云える。

なおこの症例は第24回中部整災学会において報告された症例と同一である。

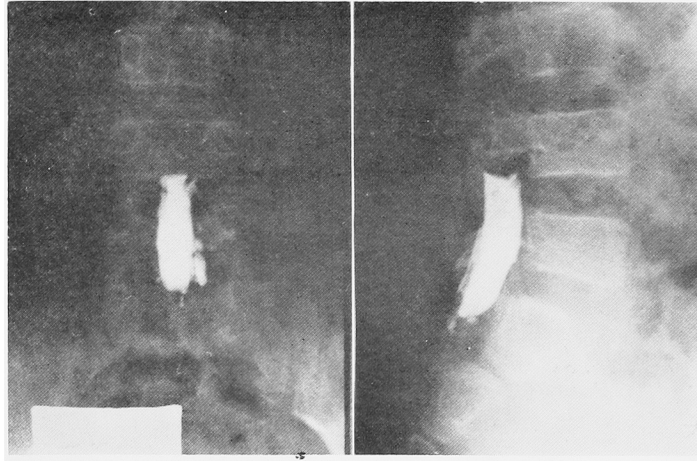
(稿を終えるに当り御協力御指示願えた当院整形外科小沢、山本博士ならびに中検病理寺下博士に感謝いたします。)

文 献

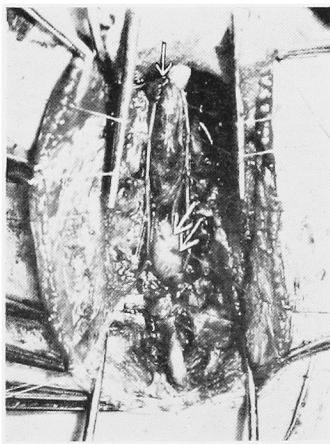
- 1) Fine, G., Smith, R. W., Jr. and Pachter, M. R. : Am. J. Med., **32** : 776, 1962.
- 2) Friedman, N. B. and Moore, R. A. : Mil. Surgeon, **99** : 573, 1946.
- 3) Friedman, N. B. : Cancer, **4** : 265, 1959.
- 4) Gerstley, J. R., Kasanin, J. and Lowenhaupt, E. : J. Pediat., **17** : 512, 1940.
- 5) Jernstrom, P. and McLoughlin, H. : J. A. M. A., **182** : 147, 1962.
- 6) 森重孝 : 小児科診療, **23** : 1581, 1960.
- 7) Prym, P. : Arch. path. Anat., **265** : 239, 1927.
- 8) Riopelle, J. L. : Union mèd. du Canada, **77** : 1399, 1948. (Cited by Fine, 1962)
- 9) 島野毅八郎, 内藤寛, 北周二 : 日本内科学会雑誌, **52** : 31, 1963.

- 10) 高橋正宜, 齊藤 脩 : 日本病理学会誌, **49** : 745, 1961.
- 11) 内田茂美 : 南大阪病院医学雑誌, **8** : 362, 1961.
- 12) Van Hasselt, J. A. : Nedel, tijdschr, genesk., **1** : 1271, 1940. (Cited by Fine, 1962)
- 13) Yamada, A. and Hiramoto, T. : Gann, **45** : 335, 1954.
- 14) Zondek, H., Kaatz, A. and Unger, H. : J. Endocrinol., **10** : 12, 1953.

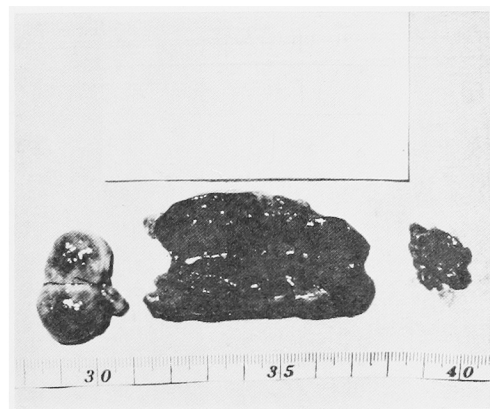
(1965年12月28日受付)



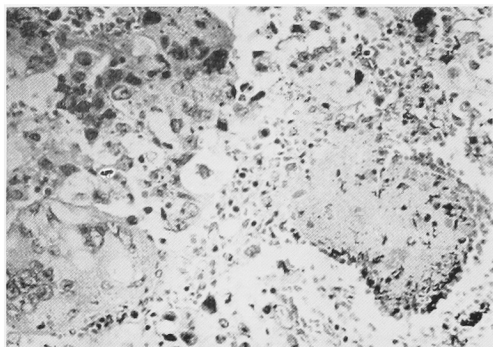
第1図 脊髄造影の正面および斜位
造影剤の通過が L_{IV} の高さで完全に閉塞されている。



第2図 手術時の所見
硬膜内髄内および髄外にそれぞれ腫瘍を認める。上方が髄内腫瘍で悪性絨毛上皮腫であり(↓)下方は髄外で神経線維腫である(⇓)。



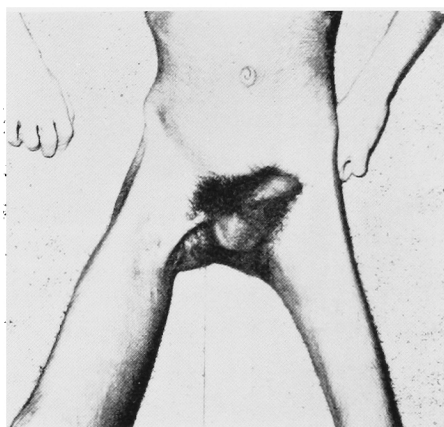
第3図 剔除標本
剔除した腫瘍で右が悪性絨毛上皮腫, 左が神経線維腫である。



HE×200

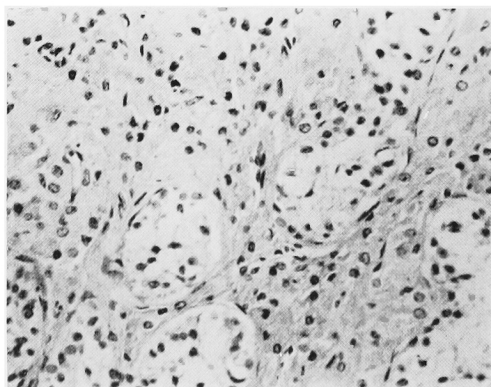
第4図 組織像

非常に悪性度の強い Trophoblastic cells
が増殖している。出血も多い。



第5図 剖検時の外観

剖検時の外見で体全面の剛毛および陰毛の発達が著るしい。



HE×200

第6図 睪丸の組織像

睪丸の連続切片の一部，全体に精子形成が甚しく
低下し，Leydig 細胞の増殖がみとめられる。