

## 多剤併用化学療法が奏効した傍大動脈リンパ節転移を有する陰嚢内横紋筋肉腫の1例

大阪警察病院泌尿器科 (部長: 藤岡秀樹)

小森 和彦, 山本 圭介, 桃原 実大, 申 勝  
高田 剛, 本多 正人, 藤岡 秀樹

### A CASE OF INTRASCROTAL RHABDOMYOSARCOMA WITH PARA-AORTIC LYMPH NODE METASTASIS —COMPLETE RESPONSE AFTER MULTIDRUG CHEMOTHERAPY—

Kazuhiko KOMORI, Keisuke YAMAMOTO, Chikahiro MOMOHARA, Masaru SHIN,  
Tsuyoshi TAKADA, Masahito HONDA and Hideki FUJIOKA  
*From the Department of Urology, Osaka Police Hospital*

We report a case of intrascrotal rhabdomyosarcoma in a 59-year-old-male. The patient with a mass in the right scrotum was at first diagnosed with epididymitis and treated with antibiotics. The mass however, grew gradually and right orchiectomy revealed intrascrotal alveolar rhabdomyosarcoma. Para-aortic lymph node metastasis was pointed out by abdominal computed tomography. He received multidrug chemotherapy consisting of vincristine, actinomycin-D, cyclophosphamide, adriamycin, and cisplatin (IRS-III regimen 35). A complete response was obtained 3 months after the start of the chemotherapy. The patient is alive without recurrence 2 years after the surgery. (Acta Urol. Jpn. 49 : 349-352, 2003)

**Key words:** Rhabdomyosarcoma, Intrascrotal, Chemotherapy

#### 緒 言

横紋筋肉腫は、小児から青年期に多く見られる疾患である<sup>1-3)</sup>。今回われわれは、壮年男性に見られた傍大動脈リンパ節転移を有する陰嚢内 (intrascrotal, 以下同義) 横紋筋肉腫に対し多剤併用化学療法が奏効した1例を経験したので報告する。

#### 症 例

患者: 59歳, 男性

主訴: 右陰嚢内腫瘍

家族歴 既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1999年11月下旬より右精巣に接する小豆大の腫瘍を自覚。腫瘍はしだいに大きくなり、2000年1月22日当科初診。右精巣上体に圧痛を伴う腫瘍を認め、右精巣上体炎の診断で抗菌薬投与するも腫瘍は増大傾向にて、同年3月21日診断 治療を兼ねた手術目的の入院となった。

入院時現症: 身長 164 cm, 体重 66 kg. 体温 35.8°C, 血圧 142/90 mmHg, 右陰嚢部は腫脹し陰嚢内に水腫様の液貯留が疑われた。また、右精巣上体に一致して拇指頭大の硬結を認めたが、圧痛はなく、その他異常所見を認めなかった。

入院時検査所見: 血液一般: WBC 8,100/mm<sup>3</sup>,

RBC 482×10<sup>6</sup>/mm<sup>3</sup>, Hb 16.2 g/dl, Htc 47.7%,  
Plt 21.1×10<sup>4</sup>/mm<sup>3</sup>

生化学: T-Bil 0.9 mg/dl, TP 6.4 g/dl, GOT 26 mU/ml, GPT 21 mU/ml, CPK 247 mU/ml, Amy 46 IU/l, BUN 9.6 mg/dl, Cr 0.7 mg/dl, Na 141 mEq/l, K 4.1 mEq/l, Cl 105 mEq/l, LDH 303 mU/ml, HCG-β <0.1 ng/ml, AFP 4 ng/ml.

尿検査: 比重1.018, pH 5.0, 蛋白 (-), 糖 (-),  
RBC 10~19/hpf, WBC 0~1/hpf.

尿培養: 陰性 (抗菌薬培養も陰性であった。)



Fig. 1. Ultrasound imaging of right scrotal contents.

画像検査所見：陰嚢部超音波検査：右精巣上部は腫脹しており、右精巣と精巣上部の境界部に精巣実質に比べてやや low echoic な領域を認め、その他陰嚢水腫を認めた (Fig. 1)。

胸部レントゲンや IVP では明らかな異常を認めな

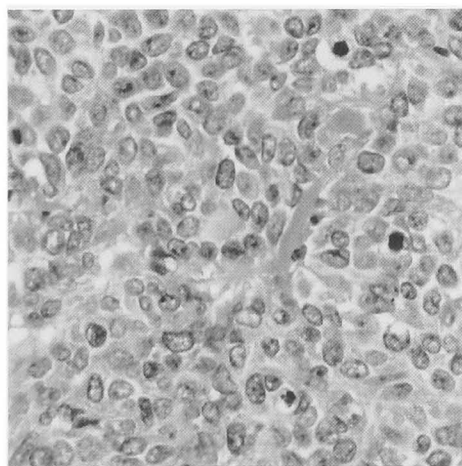
かった。

治療経過：経過から腫瘍も否定できなかったため、2000年3月22日生検をかねた手術を施行した。固有鞘膜を切開したところ、精巣上部は精巣以上に腫大、表面は粗で黄白色、弾性硬であった。精巣上部を精巣より剥離しようとするも癒着が著しく、剥離は困難と判断し、精巣摘出術を行なった。

摘除標本は 74.2 g、断面では、精巣・精巣上部の境界部にはほぼ均一な白色充実性の腫瘤を認めた (Fig.

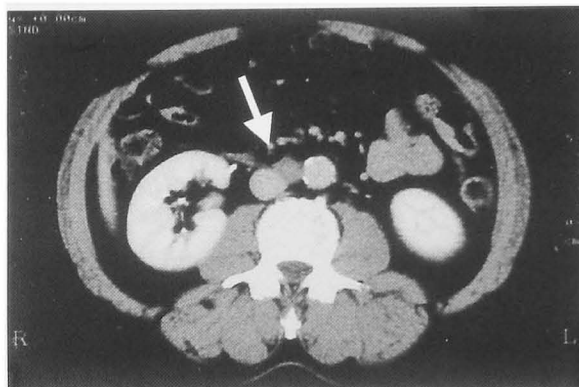


a

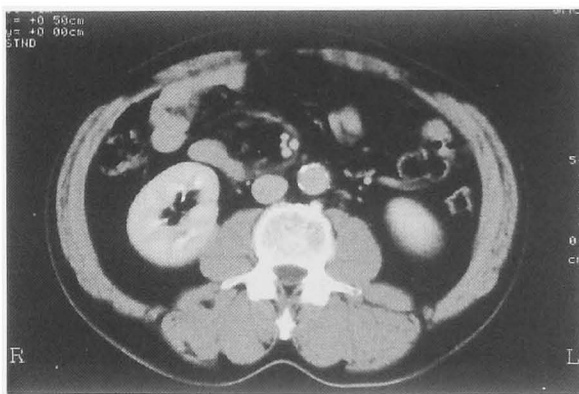


b

Fig. 2. a: Macroscopic appearance of right intratesticular tumor (black arrow), testis (arrow head) and epididymis (white arrow). b: Histopathology of the tumor. HE  $\times 400$ .

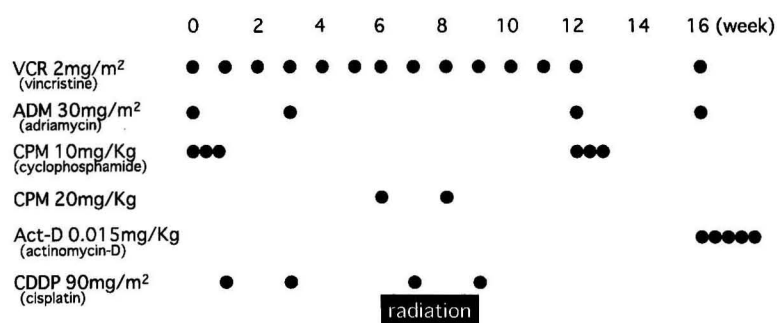


a



b

Fig. 3. a: CT before treatment shows para-aortic lymph node metastasis. b: CT 3 months after the start of treatment shows disappearance of para-aortic lymph node metastasis.



→ 治療効果を判定し、CRならVAC(VCR+Act-D+CPM)とVADRC(VCR+ADM+CPM)を交互に4週ごと1年間、その後VACを1~2年

Fig. 4. IRS-III Regimen 35.

2a).

病理組織診では, HE 染色では小型で細胞質に乏しい類円形の異型細胞が胞巣を形成し, 傍精巣領域から一部精巣内にかけて浸潤増殖する像が認められた (Fig. 2b). 免疫染色では Desmin 陽性, sm-actin 陰性, Vimentin 陽性, Myoglobin 陽性であり, 病理診断は paratesticular rhabdomyosarcoma (alveolar type) であった. 病理標本では断端陰性であった.

同年4月13日の腹部造影 CT では, 傍大動脈領域に数 mm~18 mm 大のリンパ節腫脹を認めた (Fig. 3a).

横紋筋肉腫のステージ分類としては group IV に相当するため, the third intergroup rhabdomyosarcoma study (以下, IRS-III) の regimen 35<sup>4)</sup> に基づいた化学療法 (Fig. 4) を同年5月2日より開始した. なお, 同 regimen 中のリンパ節転移に対する放射線療法は, 化学療法後のリンパ節郭清の可能性を考慮して併用しなかった.

化学療法開始後3カ月の2000年8月16日の腹部造影 CT (Fig. 3b) では, 以前に認められた傍大動脈リンパ節腫脹は消失した.

化学療法中の副作用に関しては, 骨髄抑制は軽度で, G-CSF 製剤は不要であり, ビタミン B12 製剤をあらかじめ服用しており, 末梢神経障害は認められなかった.

同年8月28日退院となり, 以降当科外来にて化学療法 (VAC 療法) を4週毎に施行中で術後2年6カ月以上経過した現在, 明らかな転移・再発を認めていない.

## 考 察

横紋筋肉腫は全腫瘍の0.04%, 全肉腫の8%を占めている<sup>5,6)</sup> その好発部位は頭頸部が約35%と最も多く, 次いで腹腔内と泌尿生殖器が約20%の順<sup>7,8)</sup> となっている.

また, 泌尿生殖器系原発の横紋筋肉腫のうち, 陰嚢内原発はその25~50%を占めるといわれている<sup>9,10)</sup>

一方で, 陰嚢内に発生する間葉系由来の腫瘍のうち30%が悪性腫瘍で, なかでも最も多いのが横紋筋肉腫 (約30%), 次いで, 脂肪肉腫 (約20%), 平滑筋肉腫 (約15%) である<sup>11,12)</sup>

われわれが集計しえたかぎりでは, 陰嚢内横紋筋肉腫の報告は, 本邦では自験例を含め138例ある. 年齢分布では, 10歳代~20歳代にかけてそのピークがあり, 50歳以上の症例は15例と非常に少ない (Fig. 5a). また, 組織型の明らかな52例の中では, embryonal type が31例と半数以上を占めていた (Fig. 5b). 年齢と組織型との関連については, embryonal type が若年者に多く, alveolar type が高年者に多いとの報告

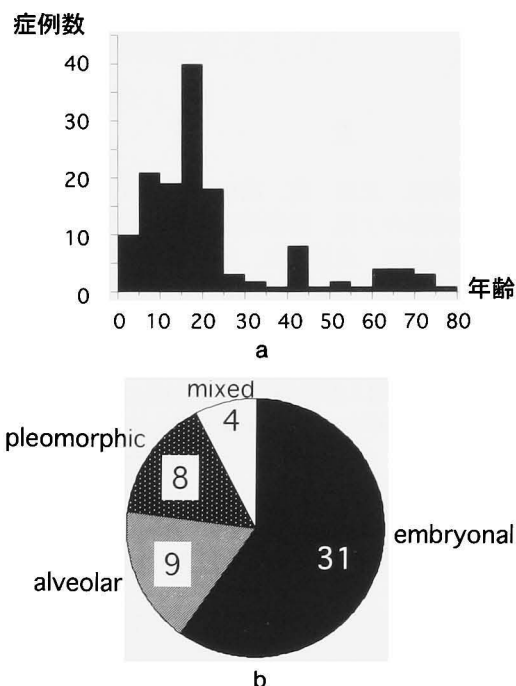


Fig. 5. a: Distribution of age (138 cases). b: Distribution of histological type (52 cases).

もあるが<sup>5)</sup>, われわれが集計したかぎりでは千葉らの報告<sup>2)</sup>と同様に特に関連は認められなかった.

横紋筋肉腫に対する治療としては, ピンクリスチン アクチノマイシンD・シクロフォスファミドを組み合わせた VAC 療法が広く行われてきたが, IRS-III においてシスプラチンが組み入れられ, 生存率は向上してきている<sup>3,4)</sup> 遠隔転移を有する group IV 症例であった自験例でも, 多剤併用療法で complete response をえることができた. しかし, IRS-III の結果では, 5年生存率は30%前後<sup>4)</sup>と依然予後は良好とはいえず, 今後も厳重な経過観察を要する.

陰嚢内に発生した横紋筋肉腫に関するこれまでの報告では, paratesticular (傍精巣) の表題が用いられることが多い<sup>1-3,7,8)</sup> しかし自験例では明らかに精巣・精巣上体内に病変を認めたので傍精巣とはせずに広義に陰嚢内 (intrascrotal) 横紋筋肉腫とした. なお, 陰嚢壁 (scrotal) から発生した平滑筋肉腫の本邦報告例<sup>13)</sup>に「陰嚢内」の用語が用いられており, 現在「陰嚢内」の語意には scrotal と intrascrotal の両義があるようである. 今後は欧文に沿って scrotal は陰嚢, intrascrotal は陰嚢内と区別する方が明確と考えられる.

## 結 語

今回われわれは, 壮年男性に見られた傍大動脈リンパ節転移を有する陰嚢内横紋筋肉腫に対し多剤併用化学療法が奏効した1例を経験したので報告した.

この論文の要旨は第178回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

## 文 献

- 1) 瀬口利信, 光林 茂, 高田昌彦, ほか: 傍睪丸横紋筋肉腫の2例. 泌尿紀要 **33**: 617-624, 1987
- 2) 千葉喜美男, 北見一夫, 熊谷治巳: 傍睪丸横紋筋肉腫の1例. 泌尿紀要 **36**: 363-366, 1990
- 3) 中西弘之, 中川修一, 三神一哉, ほか: 傍大動脈リンパ節転移を伴った傍精巣横紋筋肉腫の1例. 泌尿紀要 **43**: 233-236, 1997
- 4) Crist WM, Gehan EA, Ragab HA, et al.: The third intergroup rhabdomyosarcoma study. J Clin Oncol **13**: 610-630, 1995
- 5) 河原 優, 藤田知洋, 和田 修, ほか: 小児精巣横紋筋肉腫の1例. 泌尿紀要 **35**: 1801-1805, 1989
- 6) 梅田佳樹, 林 宣男, 亀田晃司, ほか: 肝転移の疑いで化学療法および肝左葉切除を施行した傍精巣横紋筋肉腫の1例. 西日泌尿 **58**: 678-681, 1996
- 7) Kattan J, Culine S, Terrier-Lacombe MJ, et al.: Paratesticular rhabdomyosarcoma in adult patients: 16-year experience at Institut Gustave-Roussy. Ann Oncol **4**: 871-875, 1993
- 8) LaQuaglia M: Genitourinary rhabdomyosarcoma in children; urologic oncology. Urol Clin North Am **18**: 575-580, 1991
- 9) 米沢 傑, 川島尚志, 釘宮博志, ほか: 睪丸部横紋筋肉腫の2例. 西日泌尿 **39**: 384-391, 1977
- 10) 日裏 勝, 武縄 淳, 龍治 修, ほか: 進行した傍睪丸横紋筋肉腫の1例. 泌尿紀要 **35**: 141-146, 1989
- 11) Rama Rao C, Srinivasulu M, Naresh KN, et al.: Adult paratesticular sarcomas: a report of eight cases. J Surg Oncol **56**: 89-93, 1994
- 12) Srigley JR and Hartwick RWJ: Tumors and cysts of the paratesticular region. Pathol Annu **2**: 51-108, 1990
- 13) 飯田勝之, 遠藤瑞木, 堤 雅一, ほか: 陰囊内平滑筋肉腫の1例. 泌尿紀要 **46**: 919-921, 2000

(Received on December 2, 2002)  
(Accepted on March 16, 2003)