

症 例

初発症状として陰嚢腫脹を認めた腹膜中皮腫の1例

水橋 啓一

労働者健康福祉機構富山労災病院アスベスト疾患センター

(平成25年6月6日受付)

要旨：【はじめに】腹膜中皮腫例はまれな疾患である。今回、初発症状として陰嚢腫脹を呈した腹膜中皮腫を経験したので報告する。【症例】72歳，男性【主訴】左陰嚢腫脹【職歴】鉄研磨（約4年）石綿吹きつけ（約20年）【現病歴】平成17年より胸膜プラークを伴う石綿肺（PR1）として石綿健康管理手帳健診で経過観察を行っていた。24年3月上旬より左陰嚢の腫脹を認め、3月中旬富山労災病院泌尿器科を受診した。【現症】左陰嚢は約8cm×4cmに腫大しており、触診にて陰嚢水腫と診断された。また、左精索の著しい腫大を認め陰嚢から鼠径部へ連続していた。なお、表在リンパ節腫脹は認めなかった。【検査結果】陰嚢穿刺では黄色やや濁の液体が得られ、細胞診にてClassVと判定された。【画像所見】腹部造影CTでは、膀胱直腸窩に小骨盤を超える横経約5cm縦経約10cmの巨大な腫瘤を認めたが、腹水や腹膜肥厚等は認めなかった。FDG-PET/CTでは、CTで認められた骨盤腔内腫瘤および陰嚢の一部と尿管管、更に肝皮膜など腹腔内の複数箇所にFDG集積を認めた。【経過】上記所見から悪性腫瘍と判断された。腫瘤に対して経直腸生検が施行され、上皮型中皮腫と診断されたので、CisplatinとPemetrexed併用療法が開始された。【まとめ】特異な初発症状および進展形式を呈した腹膜中皮腫を報告した。石綿ばく露者に異常所見を認めた場合、常に石綿関連疾患を鑑別に入れることが肝要と考えられた。

(日職災医誌, 62:133-138, 2014)

—キーワード—

石綿ばく露, 腹膜中皮腫, 陰嚢腫脹

はじめに

中皮腫は石綿との関連が強く、現在日本では年間約1,200例の発症がある。しかしその約80%は胸膜中皮腫であり、腹膜中皮腫は10%を占める程度で、きわめてまれな疾患である¹⁾。今回、初発症状として左陰嚢腫脹を呈した腹膜中皮腫を経験したので報告する。

症 例

[症 例] 72歳，男性

[主 訴] 左陰嚢腫脹

[既往歴] 副鼻腔炎（手術）

[嗜 好] 既喫煙者20本/日×34年

[職 歴] 鉄研磨（約4年）石綿吹きつけ（約20年）

【現病歴】平成17年より胸膜プラークを伴う石綿肺（PR1）として石綿健康管理手帳健診にて経過観察する一方、高血圧と咳喘息に対しても通院加療中であった。平成22年3月排尿障害が出現したため、泌尿器科を初診し、前立腺肥大と診断され、投薬が開始となった。とこ

ろが、翌24年3月上旬より左陰嚢の腫脹を認めたため、同泌尿器科を受診した。

【受診時現症】肺底部にて、吸気終末に捻髪音を聴取した。腹部は、平坦軟で、圧痛も認めなかった。左陰嚢は約8cm×4cmに腫大しており、触診にて陰嚢水腫と診断された。また、左精索の著しい腫大を認め、陰嚢から鼠径部に連続していた。更に陰嚢内精巣上体尾部から精管にかけて、連続的に念珠状の腫大を認めた。尚、表在リンパ節腫脹は認めなかった。

【生化学データ】白血球4,900/μLで分画に異常を認めなかったが、ヘモグロビンが12.9g/dLとわずかに低下していた。血小板は24.5×10⁴/μLと正常範囲内であった。生化学検査では尿酸が8.9mg/dLと上昇していた以外はすべて正常であった。検尿では鮮血が陽性であった。腫瘍マーカーでは、PSA、CEA、CA19-9、AFPは正常で、HCG-βのみ0.3ng/mL（正常範囲0.1ng/mL以下）と上昇していた。

【画像所見】胸部単純写真（図1）では、下肺野に優位な線状網状陰影を認め、石綿肺に矛盾しなかった。その

他肺野の腫瘍陰影や胸水は認めなかった。

胸部 CT 肺野条件 (図 2) では、肺底部優位に線維化を認め、一部 subpleural curvilinear line 様の所見も認め、石綿肺に矛盾しないと考えられた。胸部 CT 縦隔条件では前胸部などに一部石灰化を伴った胸膜プラークを認めた。

経 過

陰嚢水腫を認めたため、泌尿器系悪性腫瘍、結核、転



図 1 胸部単純写真

下肺野に優位な線状網状陰影を認め、典型的蜂巣肺を認めないなど石綿肺に矛盾しなかった。

移性悪性腫瘍などが疑われ、陰嚢穿刺がおこなわれた。穿刺にて、30ml の黄色やや濁の陰嚢水腫穿刺液が得られた。陰嚢水腫穿刺液の細胞診標本パパニコロウ染色標本 (図 3) では、標本全体に大小様々なマリモ様細胞集塊を認めた。核の大小不同、核形不整を認めるものの、均一な印象で、Class V と判定された。

この時点で腺癌、中皮腫が鑑別にあがった。また、左精索が著しく腫大していたことから、腹部内臓器の検索を行った。

腹部造影 CT 横断面 (図 4) では、小骨盤腔内の膀胱直腸窩に内部濃度が不均一な腫瘤を 1 個認め、これが原発巣と考えられた。その腫瘤により直腸は圧排されていた。また、左の精索は、健側右に比べ著しく腫大していた。さらに左にのみ精索と当該腫瘤を結ぶように太い索条物を認め、表面不整であった。更に CT を詳細に観察すると (図 5) その索条物の両端に細い索状陰影を認めそれぞれ精索と当該腫瘤につながっており、細い線状陰影は精管と考えられた。当該腫瘤は、矢状断画像 (図 6) で小骨盤腔を超え、最大径約 10cm で、表面はきわめて凹凸に富んでいた。陰嚢水腫も認められた。その他、腹膜中皮腫でしばしば認められる腹水や腹膜肥厚は認めなかった。

FDG-PET/CT の腹部横断面 (図 7) では当該腫瘤には、きわめて高度の FDG 集積を認めた。CT で腫大が確認された左精索にも高度の集積を認めた。そのほか、サイズは小さいが、腹腔内に多数の FDG 集積を認めた。

この時点で当院泌尿器科と外科の相談および患者の希望から、金沢大学病院転院となった。

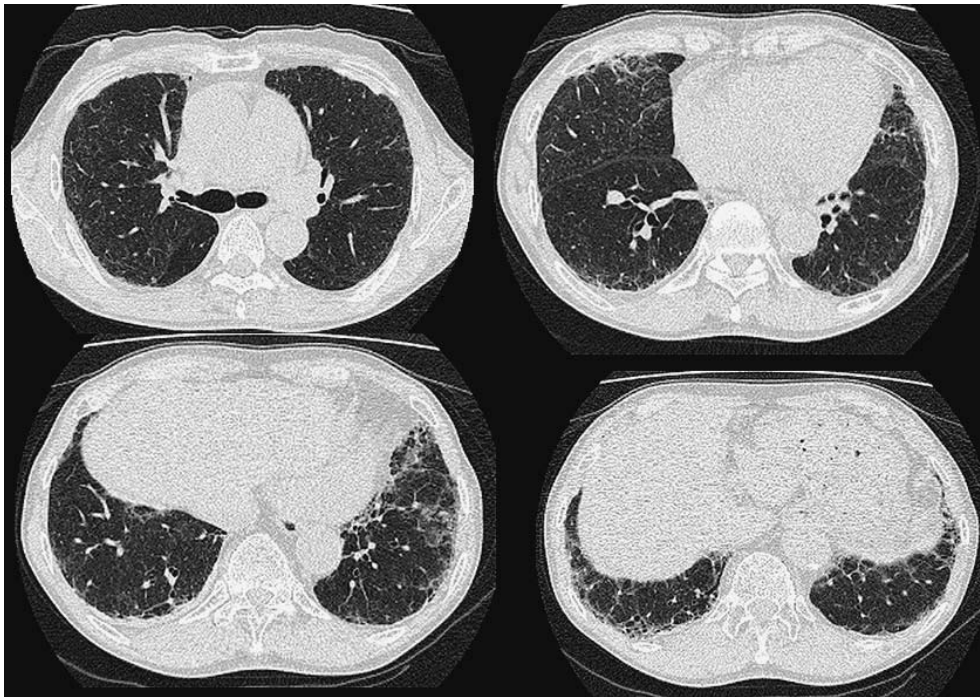


図 2 胸部単純 CT (伏臥位) 肺野条件

肺野条件では、肺底部優位に線維化を認め、石綿肺に矛盾しなかった。

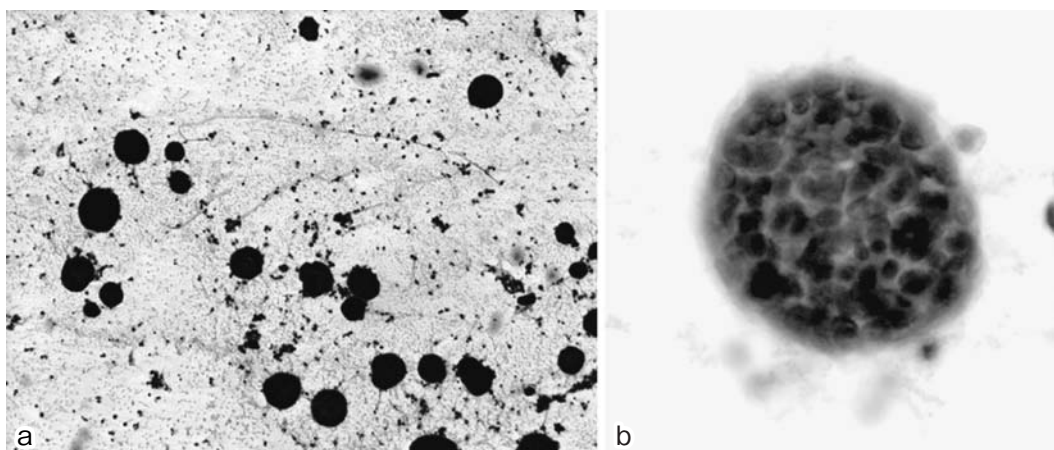


図3 陰嚢水腫穿刺液の細胞診パピコロウ染色

- a 弱拡大 (4倍)
大小様々な細胞集塊を認める.
- b 強拡大 (20倍)
1つの細胞集塊は細胞が重なりマリモ様細胞集塊であることがわかる.

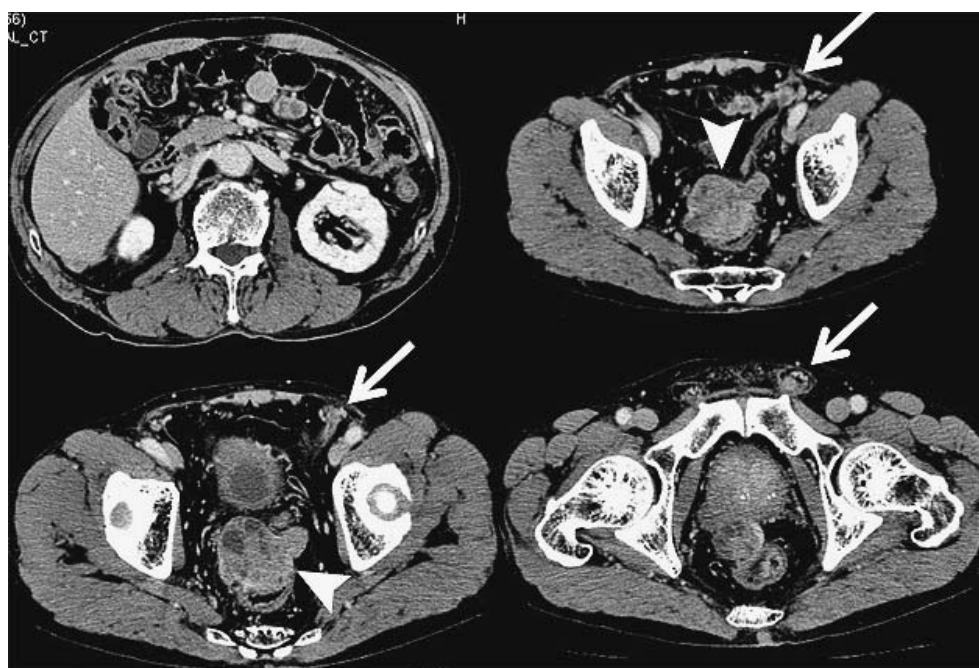


図4 腹部造影CT横断面

横断面小骨盤腔内の、膀胱直腸窩に内部濃度が不均一な腫瘤を1個(▲)認め、これが原発巣と考えられた。左精索は、著しく腫大(→)していた。

そこで、膀胱直腸窩の当該腫瘤に対して経直腸的針生検が施行された。

【生検病理所見】

HE染色(図8)では細胞密度は高く、腫瘍細胞は大型で、明瞭な核小体を示す多形核と、好酸性または両染色の比較的豊富な細胞質を示していた。偏在核をよく認め、腫瘍細胞は大部分が充実性に増生しているが、一部で管状配列や微小腺腔が認められた。

以上より、悪性腫瘍で、形態からは、低分化腺癌が疑

われたが、中皮腫などとの鑑別がひつようとなった。追加して免疫染色が施行された。

calretinin陽性(図9)、但し腺腔部はcalretinin陰性であった。他Cytokeratin 5/6陽性、WT-1陽性、Thrombomodulin陽性であった。一方、TTF-1陰性、CEA陰性、BerEP4陰性、MOC31陰性、PSA陰性であり、上皮様成分を含む悪性中皮腫と病理診断された。

診断に基づき、Cisplatin+Pemetrexedを2クール行った。一時SDを維持できたが、PDとなったため、Vi-

norelbine 単剤, さらには Paclitaxel 単剤を投与したが病勢のコントロールは困難で, 12月初旬死亡となった. 初発症状出現から死亡までは約9カ月であった.

考 察

著者が行った文献検索では, 腹膜中皮腫で陰嚢腫脹を

認めた症例は以下の2症例であった. 1症例目は惣田ら²⁾の「両側精索腫大を契機に発見された悪性腹膜中皮腫の1例」で, 両側の精索腫大と, 右の陰嚢水腫を認め, 腹腔内播種を認めた腹膜中皮腫の報告であった. 2症例目は築山ら³⁾の「鼠径ヘルニアの手術を契機に診断された腹膜中皮腫の1例」で, 鼠径ヘルニア手術中に結節が確認され, また胸壁, 腹壁に多発結節を認め, 腹壁腫瘍の生検

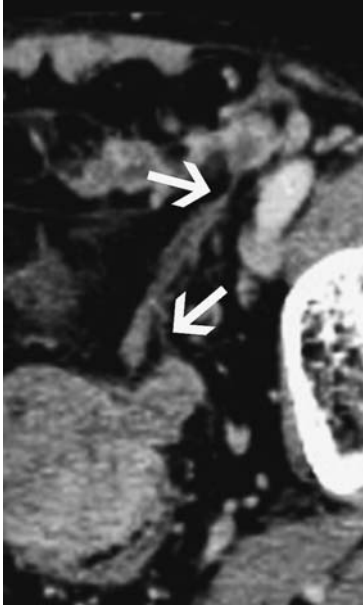


図5 腹部造影CT横断(左骨盤内拡大図)

左にのみ精索と当該腫瘤を結ぶように太い索条物を認めた. その索条物の両端に細い線状陰影を認め, それぞれ精索と, 当該腫瘤につながっていた(→). 精管と思われた.



図6 腹部造影CT矢状断面

当該腫瘤(→)は, 小骨盤腔を超え, 最大径約10cmであった.

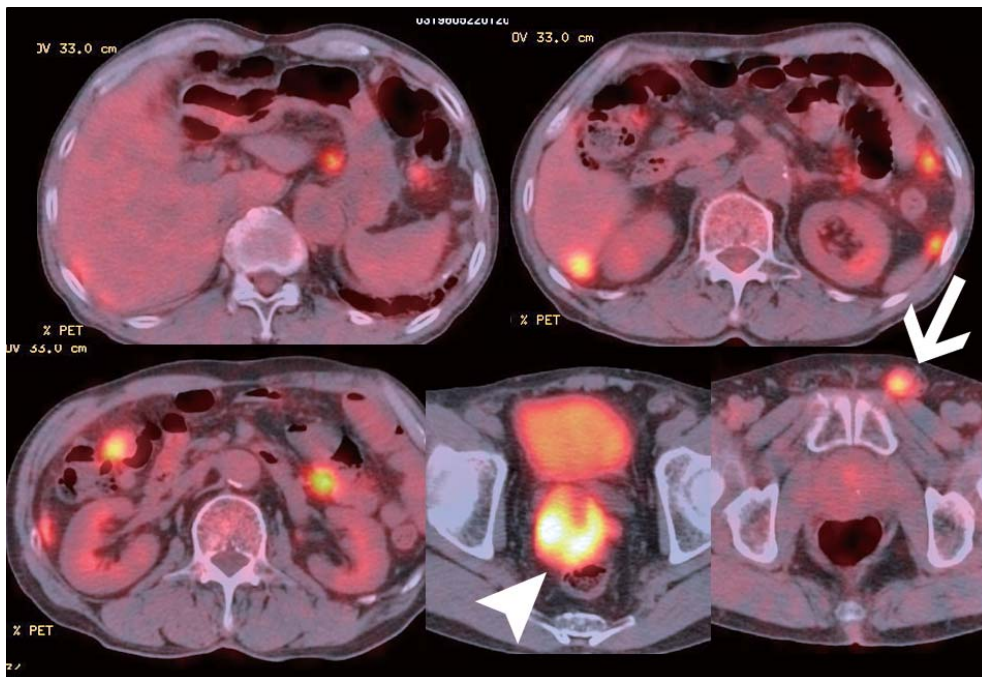


図7 腹部FDG-PET/CT横断面

当該腫瘤(▲)には, きわめて強いFDG集積を認めた. CTで肥大が確認された左精索(→)にも高度の集積を認めた. 他, サイズは様々であるが, 腹腔内に多数のFDG集積を認めた.

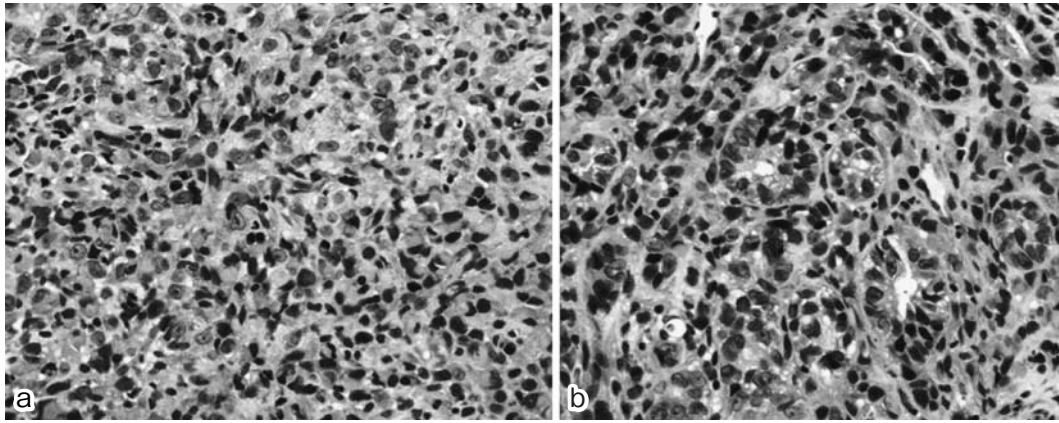


図8 病理組織標本 (HE 染色)

a 20倍

b 40倍

細胞密度は高く、腫瘍細胞は大型で、明瞭な核小体を示す多形核と、好酸性または両染色の比較的豊富な細胞質を示していた。

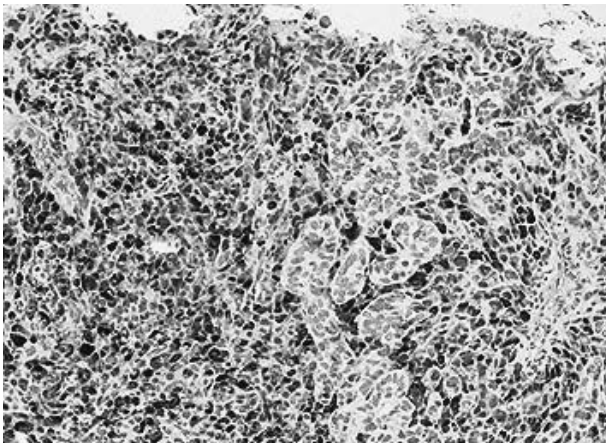


図9 免疫組織標本 (calretinin 染色)

当該細胞は calretinin 陽性であった。

から中皮腫と診断がつき、その後治療の経過で陰嚢腫大が出現したとの報告であった。本症例のような片側の陰嚢水腫で発症した腹膜中皮腫は文献検索上認められなかった。

本症例の中皮腫原発巣はどこかという点であるが、以下の3つ場合が考えられる。1番目としては、腹膜中皮腫が初発し、精巣へ進展した。2番目としては、精巣鞘膜中皮腫初発し、それが腹腔内進展した。3番目としては、腹腔内と精巣鞘膜の中皮腫がそれぞれ独立に、かつ同時に発症した。以上の3通りである。一般に、悪性腫瘍の場合、複数の病巣が存在する場合、その内一番大きな病巣を原発とすることが多い。また、冒頭にも述べたが、中皮腫のうち胸膜中皮腫が約80%で腹膜中皮腫は10%であり¹⁾、全中皮腫の割合は胸膜>腹膜>心膜>精巣鞘膜とされる。即ち精巣鞘膜中皮腫は腹膜中皮腫より更に稀である⁴⁾。従って稀な病気が、同一人に、かつほぼ同時に発生することはきわめて考えにくい。また、陰嚢水腫を来

した時点で、既に巨大な腹腔内腫瘍を形成している。以上の点を勘案すると、やはり1)腹膜中皮腫が発生し、精巣へ進展したと考えるのが妥当であろう。即ち、中皮腫の原発と考えられるのは骨盤内腫瘍であり、それから精管をたどって左精索を通り、左陰嚢へ進展した腹膜中皮腫と考えた。

文献上は、腹部悪性腫瘍が精索へ転移した症例は数件見られたが⁵⁾⁶⁾、精管そのものを介した悪性疾患進展症例は、文献上見いだせなかった。

本症例において陰嚢水腫を認めたが腹水は認めなかった点に関しては、陰嚢水は精索が腫瘍細胞で充満しており、リンパ管が圧排閉塞し陰嚢水が停留していた可能性が考えられ、一方腹腔では、広大な腹膜が存在するため、吸収が勝っていたのではないかと考えた。

1病院の検討では、中皮腫の96%に石綿ばく露歴が認められたという⁷⁾。また専門家の間では、胸膜中皮腫より腹膜中皮腫の方がより高度の石綿ばく露を受けている場合が多いとされている。本症例でも石綿吹き付けという大量ばく露の証拠である石綿肺を基礎疾患として持っている。即ち、高濃度石綿ばく露により腹膜中皮腫を発症したと考えられる。

結 語

1 特異な初発症状および進展形式を呈した腹膜中皮腫の一例を報告した。

2 石綿ばく露者に異常所見を認めた場合、常に石綿関連疾患を鑑別に入れることが肝要と考えられた。

尚、本論文の要旨は第60回日本職業・災害医学会(平成23年12月2日、3日於大阪)で発表した。

文 献

1) 労働者健康福祉機構編：アスベスト関連疾患日常診療ガ

- イド. 増補改訂版第4刷. 東京, 労働調査会, 2007, pp 24.
- 2) 惣田哲次, 山中和明, 平井利明, 他: 両側精索腫大を契機に発見された悪性腹膜中皮腫の1例. 泌尿器科紀要 58 (3): 177—180, 2012.
- 3) 築山吾朗, 米村 豊, 川村泰一, 他: 鼠径ヘルニアの手術を契機に診断された腹膜中皮腫の1例. 日本臨床外科学会雑誌 67 (7): 1706—1711, 2006.
- 4) 森永謙二編: 職業性ばく露と石綿関連疾患—基礎知識と労災補償— [改訂新版]. 東京, 三信図書, 平成17年, pp 179.
- 5) 黒河内喬範, 鈴木俊亮, 飯田直子, 他: 精索転移をきたした結腸癌肝転移の1例. 日本臨床外科学会雑誌 73 (12): 135—138, 2012.
- 6) 鈴木俊亮, 小川匡市, 大熊誠尚, 他: 精索転移をきたした

結腸癌の1例. 日本臨床外科学会雑誌 73 (1): 135—138, 2012.

- 7) 森永謙二編: 職業性ばく露と石綿関連疾患—基礎知識と労災補償— [改訂新版]. 東京, 三信図書, 平成17年, pp 182.

別刷請求先 〒937-0042 富山県魚津市六郎丸 992
労働者健康福祉機構富山労災病院アスベスト疾患センター
水橋 啓一

Reprint request:

Keiichi Mizuhashi M.D.
Asbestos Related Disease Center, Toyama Rosai Hospital,
992, Rokuroumaru, Uozu, 937-0042, Japan

A Case of Peritoneal Mesothelioma Initially Presenting with Scrotal Swelling

Keiichi Mizuhashi

Asbestos Related Disease Center, Toyama Rosai Hospital

A 72-year-old male with a 20-year career as an asbestos sprayer complained of left testicular swelling. At the beginning of March 2012, swelling of the left scrotum was observed. Palpation revealed hydrocele of the testis. Furthermore, marked hypertrophy of the left spermatic cord was noted. Testicular puncture showed slightly turbid, yellow liquid. On cytological diagnosis, the class was evaluated as V. Contrast-enhanced abdominal CT revealed a giant phyma measuring approximately 5 cm in transverse diameter and approximately 8 cm in longitudinal diameter beyond the small pelvis in the vesicorectal fossa, suggesting a primary tumor. Neither ascites nor peritoneal thickening was observed. FDG-PET/CT showed FDG accumulations in the phyma of the pelvic cavity, as detected on CT, a portion of the scrotum, inguinal canal, and hepatic capsule. Transrectal biopsy of the phyma was performed, leading to a diagnosis of epithelioid type mesothelioma. Chemotherapy was conducted, but the patient died 9 months after onset. It may be important to consider asbestos-associated diseases when abnormal findings are observed in persons exposed to asbestos.

(JJOMT, 62: 133—138, 2014)