

精囊原発腫瘍と鑑別を要した嚢胞形成を伴う異所性前立腺癌の1例

佐賀大学医学部泌尿器科学講座

前田晃宏*・東武昇平・川崎麻己・柿木寛明・有働和馬

野口 満

(受付日: 2024年8月14日, 受理日: 2024年9月24日)

抄録:

症例は84歳, 男性。近医泌尿器科にて超音波検査で右精嚢部の嚢胞性腫瘍を指摘され, 精査加療目的に当科紹介となった。血清PSA値は54.2 ng/mlと高値, 骨盤部MRIでは前立腺に明らかな腫瘍性病変は認めなかったが, 右精嚢部に4.2×3.2×4.1 cm大の嚢胞性腫瘍を認めた。原発性精嚢腫瘍, 前立腺癌の精嚢浸潤を鑑別に挙げ, 経会陰的に嚢胞性腫瘍および前立腺の針生検を行い, 併せて嚢胞内容液の回収も行った。嚢胞内容液の生化学検査ではCEAは2.3 ng/mlと低値, PSAは38,360 ng/mlと著明に高値であった。また検鏡では精子は認めなかった。針生検の病理学的所見では前立腺からは悪性所見は検出されず, 右精嚢部腫瘍よりAdenocarcinomaが検出され, 免疫染色ではGATA3陰性, AMACR陽性, Gleason score 4+5=9の前立腺癌として矛盾しない所見であった。胸部CTでは肺転移は認めず, 骨シンチグラフィーで多発骨転移を認め, 以上より精嚢に発生した嚢胞形成を伴う異所性前立腺癌と診断した。診断後よりCAB (Combined Androgen Blockade) 療法を行い, 治療開始後1年時点の血清PSA値は0.009 ng/mlまで低下しており, 治療継続中である。

今回我々が経験した, 精嚢原発腫瘍と鑑別を要した嚢胞形成を伴う異所性前立腺癌の1例について, 文献的考察を交えて報告する。

(西日泌尿. 87: 67-72, 2024)

キーワード: 異所性前立腺癌, 前立腺嚢胞, 精嚢原発腫瘍

緒 言

原発性精嚢腫瘍は稀だが悪性腫瘍の予後は不良であるため鑑別診断は重要である。今回, 我々は偶発的に発見された精嚢の嚢胞性病変に対し針生検にて精嚢に発生した嚢胞形成を伴う異所性前立腺癌と診断した1例を経験したので文献的考察を交えて報告する。

症 例

患者 84歳, 男性。既往歴に高血圧症と高尿酸血症がある。

現病歴 79歳時, 近医泌尿器科で膀胱腫瘍に対するTUR-Btが施行された。摘出標本の病理診断はPapillary urothelial carcinoma (high grade, pT1)であり, 術後に抗癌剤による膀胱内注入療法が実施された。

以降, 近医泌尿器科で定期的に超音波検査や膀胱鏡検査, 尿細胞診検査が実施されるも再発なく経過していた。84歳時, 経過観察目的の超音波検査で右精嚢部に嚢胞性腫瘍が指摘されたため精査加療目的に当科紹介となった。

身体所見 直腸診では右精嚢部に表面平滑で弾性軟な腫瘍を触知した。

血液検査 PSAは54.2 ng/mlと高値。血算・生化学では異常値を認めなかった。

画像所見 骨盤部MRIでは前立腺に明らかな腫瘍性病変は認めなかったが右精嚢部に4.2×3.2×4.1 cm大の嚢胞性腫瘍を認めた (Fig. 1)。嚢胞性腫瘍は血性成分を含み多房性であり嚢胞壁に充実部位を認めた。腹部造影CTでは右精嚢部腫瘍は増強効果を有する充実部分を認めた (Fig. 2) がリンパ節腫大や遠隔転移を示唆する所見はみられなかった。経直腸前立腺部への超音波検査では前立腺に低エコー域は認めなかったが右精嚢の嚢胞性腫瘍の同定は容易で針生検は可能と判断した (Fig. 3)。膀胱鏡検査では膀胱内に病変はみられなかった。尿細胞診はclass Iであった。

* 〒849-8501 佐賀県佐賀市鍋島5-1-1
TEL 0952-34-2344, FAX 0952-34-2060
E-mail 1690maechan@gmail.com

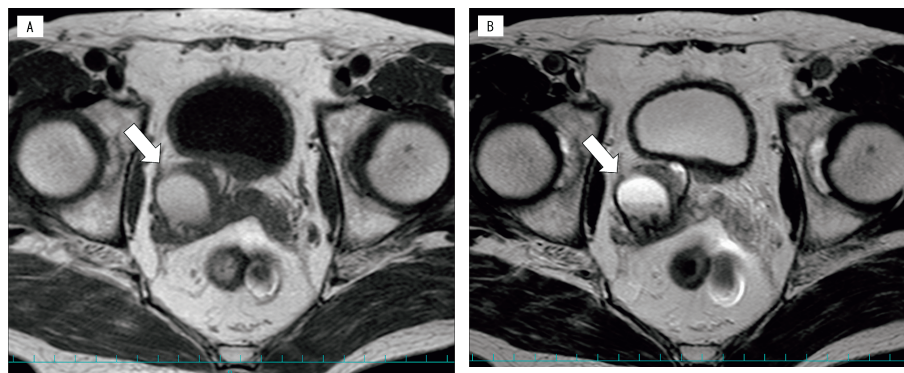


Fig. 1 (A) T1-weighted image (B) T2-weighted image
MRI shows a cystic tumor located in the right seminal vesicle

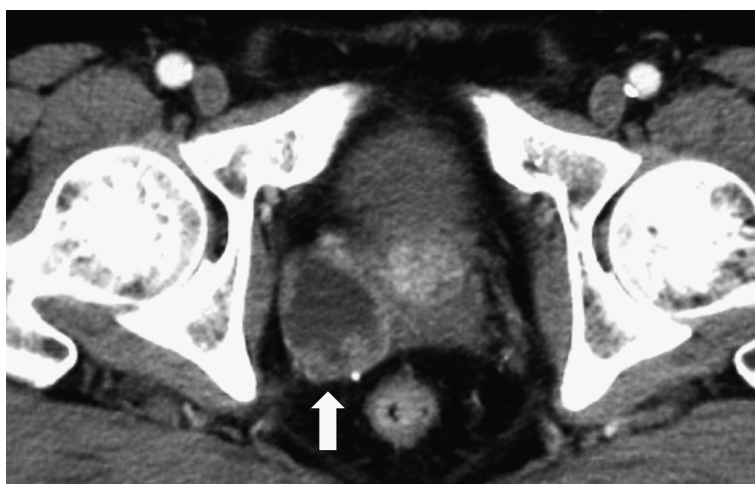


Fig. 2 CT shows a cystic tumor with contrast enhancement located in the right seminal vesicle

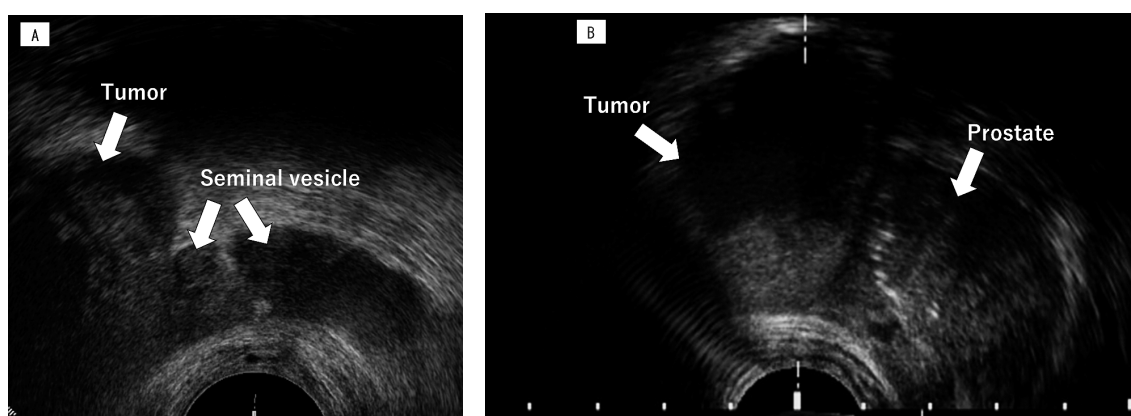


Fig. 3 Transrectal ultrasonography shows a cystic tumor continuous with the right seminal vesicle (A) and adjacent to the prostate (B)

PSA が高値であったことから前立腺癌の精嚢浸潤を疑ったが、精嚢以外に異常所見を認めなかったため、原発性精嚢腺癌、精嚢の良性疾患（嚢胞性疾患、射精管閉塞性嚢胞）などの可能性も考えた。鑑別診断のために経会陰的に前立腺（右精嚢部腫瘍も含む）生検を行い、併せて嚢胞内容液の回収も行った。

生検時の所見 脊髄くも膜下麻酔導入後、碎石位とし経直腸的超音波にて右精嚢部の腫瘍を同定した。同部を経会陰的に 22 G 針で穿刺し内容液を採取した。嚢胞の内容液は赤褐色で古い血腫様であった。合計 30 ml 回収し生化学検査と検鏡を行った (Fig. 4)。その後、18G 針で右精嚢部腫瘍の充実部を針生検 (4 カ所) し病理検査に提出した。最後に前立腺を経会陰的に針生検 (左右合計 6 本) を行い病理検査に提出した。検査時間は 28 分、



Fig. 4 Puncture drainage fluid of cystic tumor of the seminal vesicle

出血量は少量であった。

嚢胞内容液の検査結果 生化学検査の結果は CEA は 2.3 ng/ml と低値、PSA は 38,360 ng/ml と著明に高値であった。また検鏡では精子は認めなかった。

病理学的所見 右精嚢部腫瘍から採取した組織から Adenocarcinoma が検出され (4 本中 2 本)、免疫組織染色では GATA3(-), AMACR(+) で前立腺癌 (Gleason score 4+5=9) として矛盾しない所見であった。前立腺からは悪性所見は検出されなかった (Fig. 5)。

転移病巣の有無を評価する目的で撮影した胸部 CT と骨シンチグラフィーでは肺転移は認めなかったが、多発骨転移を認めた。以上の所見より精嚢に発生した嚢胞形成を伴う異所性前立腺癌と診断した。

診断後から開始された CAB 療法により PSA は順調に低下し、治療開始後 1 年時点の PSA は 0.009 ng/ml まで低下した。同時点で撮影した骨盤部 MRI では嚢胞部腫瘍は縮小傾向で新規病変は認めていない。

考 察

原発性精嚢腫瘍は極めて稀であり、多くは隣接臓器(前立腺や直腸)に由来する腫瘍の直接浸潤である¹⁻³⁾。また、男性の骨盤内嚢胞性病変は少なく、特に精嚢部の嚢胞性病変の診療機会は稀である⁴⁾。泌尿器科を受診した成人男性 475 名に経直腸的超音波検査を施行した Soh ら⁵⁾の研究報告では 9.1 % (43/475) で前立腺もしくは精嚢の嚢胞性変化が存在したことが報告され、前立腺や精嚢腺の嚢胞性変化自体はさほど珍しくないようである。また、MRI の普及や技術の進歩から、MRI で骨盤内嚢胞性病変の位置や形態の特徴を捉えることは以前より容易となっている⁶⁾。Pacheco ら⁶⁾は男性の骨盤内嚢胞性病変の診断に関するフローチャートを作成してい

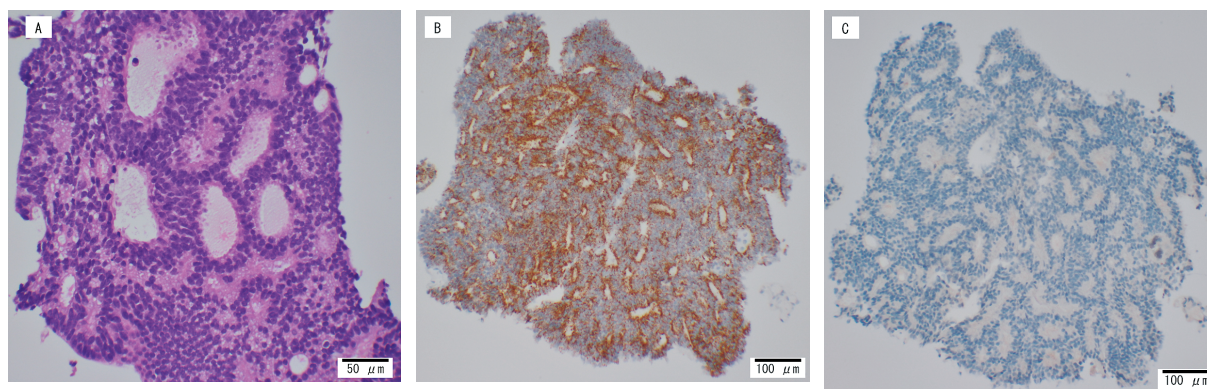


Fig. 5 Microscopic findings of the cystic tumor show adenocarcinoma of the prostate (Gleason score: 4+5=9) (A: HE stain, $\times 200$). Immunohistochemical staining shows positive staining to AMACR (B) and negative staining to GATA3 (C).

る。このフローチャートに従えば、男性の骨盤内嚢胞性病変を認めた場合、まず前立腺外にあるのか前立腺内にあるのかを確認し、前立腺外であれば精嚢、精管、カウパー腺、その他の腫瘍を想定する。また、前立腺内の病変であれば外側か傍正中か正中かで鑑別疾患を挙げていくこととなる。しかし、それらはあくまでも鑑別疾患にすぎず個々の症例の情報や病理検査から診断を特定することが重要である。Somwaru ら⁷⁾ は本症例と同様、精嚢に発生した異所性前立腺癌のケースレポートを報告しており、画像診断にはマルチパラメトリック MRI が有用であったことを述べている。

本症例では画像検査上、嚢胞性病変は精嚢部に位置し、前立腺内には特に異常所見はみられなかった。しかし、血清 PSA が高値であることから前立腺癌の存在は頭に入れつつも精嚢疾患である原発性精嚢腺癌、精嚢の良性疾患（嚢胞性疾患、射精管閉塞性嚢胞）を鑑別に挙げた。原発性精嚢腺癌は極めて稀な疾患で予後は不良（平均生存期間は診断から約 2 年）である⁸⁾。画像検査での診断は困難なことが多いが^{1,9)}、血清 PSA は正常なことが多く、血清 CA-125 の測定が診断に有用であるとの特徴がある⁸⁾。

精嚢の嚢胞性病変のうち良性疾患は精嚢嚢胞⁴⁾、精嚢 Cystadenoma¹⁰⁾、精嚢嚢胞性乳頭腺腫²⁾、射精管閉塞性精嚢嚢胞¹¹⁾、BCG 膀胱内注入療法後に生じた精嚢部結核性膿瘍などが挙げられる¹²⁾。いずれも嚢胞性病変を呈し、画像検査のみでは確定診断に至るのは困難である。それぞれ稀な疾患であるが鑑別疾患に挙げ、病理学的検査を含めた診断アプローチが必要となる。

本症例の嚢胞内容液には精子は含まれていなかったため射精管閉塞性精嚢嚢胞の可能性は低いと考えた。また、本邦の嚢胞形成を伴う前立腺癌 95 例の検討では¹³⁾、嚢胞穿刺液の性状が血性であったのは 71.6% で内容液の PSA 値は 10.4 ～ 610,000 ng/ml であったと報告している。

一方で良性の前立腺嚢胞においても内容液中の PSA 値が高値を来した報告もあるため¹⁴⁾、本症例の嚢胞内容液が血性かつ内容液の PSA 高値 (38,360 ng/ml) のみを根拠に前立腺癌と判断するのは些か早計である。

本症例では嚢胞内充実部分の針生検による病理検査によって前立腺癌が検出され、嚢胞形成を伴う前立腺癌と診断に至った。嚢胞形成を伴う前立腺癌は比較的稀であり、我々が調べた限りでは本症例は本邦 99 例目に該当すると考えられた。

過去の報告をまとめると平均年齢は 73 歳 (51 ～ 90 歳) で主訴は排尿障害が最も多く (56.8%) 次いで血尿が多

い (20.0 %) ^{3,13,15-18)}。血清 PSA 値はほぼ全例で高値を示していた。前立腺癌の病期としては Stage IV が 54.7 % を占め、進行例が多い。前立腺癌に伴う前立腺嚢胞は①乳頭状嚢胞腺癌に由来するもの②貯留性嚢胞の嚢胞上皮の悪性化によるもの③前立腺癌の中心壊死から仮性嚢胞を形成するもの、の 3 つの成因が考えられている¹⁹⁾。

前立腺癌の中心壊死による仮性嚢胞は内容液が血性となり壊死物質が含まれることが多いが³⁾、本症例はそのタイプに分類されると考えられた。

嚢胞形成を伴う前立腺癌の治療法は基本的に通常の前立腺癌と変わらない。ただ、嚢胞形成を伴う前立腺癌は進行性であることが多く内分泌療法が選択される症例は多いが、根治的前立腺全摘除術が選択されることもあり、嚢胞の合併摘除も同時に行われている^{13,20,21)}。嚢胞が巨大な症例においては術野の確保が困難で周囲臓器との強固な癒着など理由により膀胱や直腸壁と合併摘除に至ったとの症例報告もあるが^{21,22)}、これらは全て開放手術による症例報告である。

近年、標準的な手術アプローチとなったロボット支援下手術なら視野の確保が容易であることや鉗子の操作性の良さによって前立腺と嚢胞の合併切除は以前より容易な操作となり周囲臓器との合併切除となる症例はかつてほど多くない可能性はある。

遠隔転移やリンパ節転移を有する症例では手術療法より内分泌療法が選択されるケースが増えるが、内分泌療法によって前立腺と嚢胞の縮小が得られることになれば根治は期待できなくとも、排尿状態の改善を期待することは可能である²³⁾。残念ながら内分泌療法が奏功しない症例では放射線治療やミノサイクリン嚢胞内注入療法が奏功するとの報告もある¹⁹⁾²⁴⁾。

幸い、本症例では内分泌療法が著効し PSA の低下や嚢胞の縮小を得られている。嚢胞形成を伴う前立腺癌患者の予後に関するエビデンスの蓄積は不十分である。嚢胞形成を伴う前立腺癌の症例報告の積み重ねが本病態の詳細を明らかにする最も重要な過程であるのは言うまでもなく本症例報告がその一部を担うことになるのなら望外の喜びである。

結 語

精嚢原発腫瘍と鑑別を要した嚢胞形成を伴う異所性前立腺癌と診断した 1 例を経験したので報告した。

利益相反自己申告：申告すべきものなし

文 献

- 1) Yao, Y. et al.: Primary seminal vesicle adenocarcinoma with a history of seminal vesicle cyst: a case report and review of literature. *World J. Clin. Cases.* **11**(14): 3261-3266, 2023.
- 2) Heijkoop, B. et al.: Cystic papillary adenoma of the seminal vesicle. *BMC Urol.* **21**(1): 62, 2021.
- 3) Itami, Y. et al.: A case of prostatic cancer with a low PSA level accompanied with cystic formation requiring differentiation from adenocarcinoma of the seminal vesicle. *Hinyokika Kiyo.* **58**(7): 349-353, 2012.
- 4) Somiya, S. et al.: A case of seminal vesicle cyst incidentally diagnosed during rupture of abdominal subcutaneous abscess. *Hinyokika Kiyo.* **64**(4): 193-195, 2018.
- 5) Soh, S. et al.: Use of ultrasonography in the diagnosis of cystic lesions in seminal vesicles and prostate. *Hinyokika Kiyo.* **41**(1): 33-37, 1995.
- 6) Pacheco, E. O. et al.: Male pelvic cysts: a didactic diagnostic approach. *Radiographics.* **41**(6): 179-180, 2021.
- 7) Somwaru AS, et al.: Prostate cancer arising in ectopic prostatic tissue within the left seminal vesicle: a rare case diagnosed with multi-parametric magnetic resonance imaging and magnetic resonance imaging-transrectal ultrasound fusion biopsy. *BMC Med Imaging.* **16**: 16, 2016.
- 8) Katafigiotis, I. et al.: Primary adenocarcinoma of the seminal vesicles. A review of the literature. *Arch Ital Urol Androl.* **88**(1): 47-51, 2016.
- 9) Bhat, A. et al.: Primary seminal vesicle adenocarcinoma: a lethal yet cryptic malignancy with review of literature. *BMJ Case Rep.* **12**(12), 2019.
- 10) Ishida, M. et al.: Seminal vesicle cystadenoma with concurrent prostate cancer: a case report. *Hinyokika Kiyo.* **66**(10): 351-355, 2020.
- 11) Kijima, T. et al.: A case of seminal vesicle cyst due to the obstruction of the ejaculatory duct: possible association with prostate cancer. *Hinyokika Kiyo.* **50**(2): 123-125, 2004.
- 12) 仁禮卓磨・大内秀紀: 膀胱癌に対する BCG 膀胱内注入療法後に生じた精嚢, 精管における結核性膿瘍の 1 例. *泌尿器外科.* **35**(3): 252-257, 2022.
- 13) 萩原 奏・他: 嚢胞状病変を随伴した前立腺癌の 2 例. *西日本泌尿器科.* **73**(8): 430-434, 2011.
- 14) Yasumoto, R. et al.: Is a cystic lesion located at the midline of the prostate a müllerian duct cyst? Analysis of aspirated fluid and histopathological study of the cyst wall. *Eur Urol.* **31**(2): 187-189, 1997.
- 15) 宮前公一・他: 後腹膜嚢胞を形成した前立腺癌の 1 例. *泌尿器外科.* **27**(12): 1945-1948, 2014.
- 16) 駒井好信・他: 嚢胞形成を伴う前立腺癌. *臨床泌尿器科.* **58**(9): 703-706, 2004.
- 17) 福本哲也・他: 嚢胞形成をきたした前立腺癌. *臨床泌尿器科.* **59**(2): 157-160, 2005.
- 18) 石川公庸・他: 前立腺癌に合併した前立腺嚢胞. *臨床泌尿器科.* **62**(10): 807-809, 2008.
- 19) 柴田憲彦・他: 内分泌治療経過中に嚢胞状変化のみられた前立腺癌の 1 例. *西日本泌尿器科.* **61**(7): 576-578, 1999.
- 20) Fukuhara, S. et al.: A case of papillary cystadenocarcinoma of the prostate. *Hinyokika Kiyo.* **50**(8): 531-534, 2004.
- 21) 福森知治・他: 嚢胞形成を伴った前立腺癌の 1 例. *西日本泌尿器科.* **57**(1): 80-83, 1995.
- 22) Kim, S. C. et al.: A case of prostate cancer with cyst formation. *Hinyokika Kiyo.* **47**(9): 653-636, 2001.
- 23) 橋本邦宏・他: 嚢胞形成をきたした前立腺癌の 1 例. *西日本泌尿器科.* **56**(10): 1224-1228, 1994.
- 24) 鈴木一実・他: 塩酸ミノサイクリン注入療法を行った嚢胞形成性前立腺癌 嚢胞内容液の組成についての検討. *西日本泌尿器科.* **65**(4): 166-169, 2003.

ECTOPIC PROSTATE CANCER WITH CYSTIC FORMATION REQUIRING
DIFFERENTIATION FROM A PRIMARY TUMOR OF THE SEMINAL VESICLE :
A CASE REPORT

AKIHIRO MAEDA, SHOHEI TOBU, MAKI KAWASAKI, HIROAKI KAKINOKI
KAZUMI UDO AND MITSURU NOGUCHI

Saga Medical School Faculty of Medicine, Saga University

Abstract :

An 84-year-old man was diagnosed with a cystic mass in the seminal vesicle area on ultrasound at a local urology department and referred to our department. Serum PSA level was 54.2 ng/ml, and pelvic MRI revealed no obvious mass lesion within the prostate, but a cystic mass measuring $4.2 \times 3.2 \times 4.1$ cm was found in the right seminal vesicle. Primary seminal vesicle tumor and seminal vesicle invasion of prostate cancer were listed as the differential diagnosis, and needle biopsy of the cystic mass and prostate was performed transperineally, and cyst fluid was also collected. Biochemical tests of the cyst fluid showed a low CEA of 2.3 ng/ml and a markedly high PSA of 38,360 ng/ml. In addition, no sperm were detected within the specimen. Pathological findings of needle biopsy showed no malignant findings in the prostate, but adenocarcinoma was detected in the right seminal vesicle mass. Immunostaining showed the findings of GATA3 negative, AMACR positive, and a Gleason score of $4+5=9$, findings which were consistent with prostate cancer. Chest and abdominal CT scan showed no lymph node metastasis, but bone scintigraphy showed multiple bone metastases. Based on the above, the patient was diagnosed with Ectopic prostate cancer with cyst formation arising in the seminal vesicles. CAB therapy has been performed since diagnosis, and one year after the start of treatment, the serum PSA level has decreased to 0.009 ng/ml, and the patient is continuing treatment. We herein report a case of prostate cancer with cystic formation requiring differentiation from a primary tumor of the seminal vesicle.
(Nishinohon J. Urol. **87** : 67-72, 2024)

key words : Ectopic prostate cancer, Prostate cyst, Primary seminal vesicle tumor
