陰嚢内蔓状血管腫の1例

大阪鉄道病院泌尿器科(部長:小早川等) 三橋 誠,梁間 真,小早川 等

浅川クリニック(院長:浅川正純) 浅 川 正 純

RACEMOSE HEMANGIOMA OF THE SCROTUM: A CASE REPORT

Makoto Mitsuhashi, Makoto Harima and Hitoshi Kobayakawa From the Department of Urology, Osaka JR Hospital

Masazumi Asakawa From the Asakawa Clinic

A 65-year-old male, with a painless right scrotal mass, underwent right radical orchiectomy and resection of the mass, because the mass was difficult to separate from the right testicle in scrotal exploration. The histopathological diagnosis of the mass was racemose hemangioma. Scrotal racemose hemangioma is a rare lesion and only two cases have been reported previously in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 48: 503–506, 2002)

Key words: Scrotum, Racemose hemangioma

緒 言

陰嚢内血管腫は精巣,精巣上体,精索とは別に発育する比較的稀な疾患である。中でも蔓状血管腫と組織診断された例は,本邦においては文献上,2例を認めるのみである。今回,65歳,男性に生じた陰嚢内蔓状血管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者:65歳,男性 主訴:排尿障害

既往歷:高血圧,高脂血症.

生活習慣:1日2,3合の飲酒あり.

家族歴:特記事項なし

現病歴:1996年頃より近医にて前立腺肥大症について内服治療されていたが、1998年11月に前立腺特異抗原(PSA: prostate specific antigen)の高値(=8.0 ng/ml)を指摘され、精査目的で1998年12月16日当院に紹介された。その際、触診にて右精巣上部に無痛性腫瘤の存在を指摘された。なお PSA については再検査においてその値の正常化が認められている。

現症:身長 162.5 cm, 体重 71 kg. 一般状態は良好. 視触診上, 胸腹部に異常を認めず, 全身の皮膚や骨格に特記すべき所見を認めなかった. 局所所見として右精巣上方に表面不整な弾性硬の無痛性腫瘤を認めた. 腫瘤は拍動を触知せず, 陰嚢皮膚に特に変化を認

めなかった. また右陰嚢内容は正常であった.

検査所見:血液生化学検査において肝機能障害(GOT=142 IU/I, GPT=74 IU/I)と高脂血症を認めた.その他の末梢血液像,血液生化学,血液電解質に特に異常値は認められなかった.胸部X線写真,心電図,尿所見に異常を認めなかった.骨盤部 MRI 検査(T1強調)では右精巣上部に径 4 cm 大の不均一に造影される腫瘤を認めた(Fig. 1).右精巣との境界は判別不可能であった.以上より陰嚢内の悪性腫瘍,中でも精巣腫瘍の疑いを否定しえなかったため,当科入院後1999年1月14日に腰椎麻酔下に手術を施行した.



Fig. 1. MRI (T1-weighted) showed the heterogenetically enhanced mass (arrow) upward of the right testis.

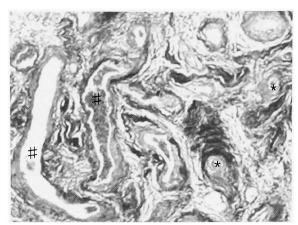


Fig. 2. Microscopy of the mass showed racemose hemangioma (H-E ×100); asterisk-arterial vessels. #-venous vessels.

手術所見:腫瘤は精巣、精巣上体と一塊であったため、右高位精巣摘除術および腫瘤摘出を同時に行った. その後摘出した一塊の標本について注意深く腫瘤と精巣の間を剝離したところ、腫瘤は精巣、精巣上体、精索とは別個であることが判明した. また、それらとの間に癒着を認めなかった. 腫瘤の割面は灰白色で軟かく、また内部に拡張血管らしきものの散在を認めた.

病理組織学的所見:腫瘤からの標本には主として不 規則に蛇行した静脈が見られたが、その間に動脈性の 血管の混在を認めた(Fig. 2). また精巣、精巣上体か らの標本には、特に異常所見を認めなかった.

経過:術後経過は良好であり, 術10日後の1999年1月24日に退院となった. 以後, 当科外来にて経過観察を行っているが腫瘤の再発を2002年1月の時点では認めていない.

考 察

蔓状血管腫は, 1853年に Stanley によって初めて その病名が記載されたが、他に動静脈奇形、動静脈血 管腫など、種々の名称が同義語として挙げられてお り、これらの名称の定義、概念の異同については明確 に論じられていない. 近年になって本症と動静脈性血 管腫 (arteriovenous hemangioma, AVH) は区別し て認識すべきだという意見1)や深在型 AVH が蔓状血 管腫であるとの意見²⁾が出てきている.しかし本症の 定義自体、異型血管腫の一型であるということ以外は まだ見解が統一されていないのが現状である. 組織学 的には動静脈が互いに隣接し、両者間のシャントを連 続切片において証明しうるのが特徴であると言われて おり、拡張蛇行する静脈成分よりなる海綿体血管腫と はその点で異なっている.成書³⁾によれば表在性のも のと深部組織に出現するものの2つに大別され, 前者 は成人のおもに頭頸部の真皮に認められ、後者は頭頸 部、四肢、または体幹に発生し、筋肉内に見られることも稀でないとしている。伊泊などの報告⁴⁾によれば、その発生部位の70%を顔面、頸部が占め、また発症年齢としては生下時より存在したものが最多であったという。僅かながら自験例の様な高齢者での発見例が報告されているが、その場合慢性肝疾患との関連が示唆されている^{5,6)}

血管腫自体は最も頻度の高い先天性病変と言われているが、外性器に生じる例は比較的稀である。Gibsonは陰嚢の血管性病変を陰嚢真皮より生じる hemangioma of skin と、陰嚢皮下組織より生じる hemangioma of subconnective tissue に分類している⁷⁾ 前者は angiokeratoma とも言われ高齢者に比較的多く認められる。後者に相当する陰嚢内血管腫は比較的稀な疾患であり、本邦では自験例を含めると文献上40例が報告されている(Table 1)。その組織診断の内訳は海綿状血管腫が19例と一番多く、一方、自験例と同様の組織型と考えられる動静脈性血管腫は、1990年に江原と1994年に吉田が各1例ずつ報告しているのみであった。

陰嚢内血管腫の症状としては大部分が無痛性の陰嚢 内腫瘤であるが、疼痛を伴うものもあり、急激な腫瘤 の増大による周囲組織の圧排が原因と思われる.外力 により血管腫が破裂し陰嚢内血腫を形成した例も報告 されている.

また発生部位は、本邦例では不明1例を除くとすべて片側発症である。一方、その重量と年齢、患側については一定の傾向は見られなかった。

診断は皮膚の色調の変化を伴った弾性の無痛性陰嚢 内腫瘤の存在が手がかりとなるが、術前に診断しえた 報告例は稀である.また近年、本症の診断に超音波検 査の有用性が報告されている^{8.9)}が確定診断には組織 診断が必要である.また欧米では血管腫の家族歴を有 する症例¹⁰⁾や遺伝性疾患に合併した症例¹¹⁾も報告さ れており、特に若年者の場合は念頭に置かなければな らないと思われる.

治療は本邦では全例に腫瘤摘除が行われているが, 術後の再発や悪性化の報告はなく予後は良好である.

また陰嚢内の温度上昇によると思われる無精子症も報告されており¹²⁾,若年者で比較的腫瘤が大きい場合には,造精機能の精査も必要と思われる.

自験例では触診上や MRI 画像所見および手術所見では腫瘤が精巣や精巣上体とは独立しているとの確信が得られなかった. 可能なかぎり腫瘤のみの切除にすべきだったと思われるが, 患者が高齢であったこともあり, 高位精巣摘除術および腫瘤摘出術を施行した.

結 語

陰嚢内血管腫は比較的稀な疾患であり、中でも蔓状

Table 1. Hemagioma of the scrotum reported in Japan

No.	報告者	 年度	年齢	患側	組織診断	文 献
1	————— 中野	1965	10	———— 左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 56 :771
2	宮川	1966	21	右	Hemo-lymphangioma	泌尿紀要 12:1129
3	中神	1968	14	右	Hemangioma	臨泌 22:1003-1005
4	阿部	1971	18	左	Hemo-lymphangioma	日泌尿会誌 62 :197
5	梶本	1972	2	右	Hemo-lymphangioma	日泌尿会誌 63:683
6	塚田	1973	14	左	Hemangioma	手術 27 :1173
7	平田	1975	27	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 64:611
8	金森	1975	56	左	Hemangioma	日泌尿会誌 67:287
9	大沢	1976	12	左	Hemangioma	臨泌 30:523-526
10	横山	1976	4	左	Cavernous hemangioma	臨泌 30:625-629
11	江尻	1976	5	右	Hemo-lymphangioma	泌尿紀要 22 :515-519
12	家田	1977	26	左	Cavernous hemangioma	不明
13	日江井	1978	16	左	Cavernous hemangioma	泌尿紀要 27 :111-114
14	仲田	1980	2	左	Cavernous hemangioma	臨泌 35 :1109-1111
15	阿部	1981	3	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 72:928
16	漆久保	1982	76	?	Hemangioma	日小児外会誌 18:929
17	伊藤	1983	19	右	Hemo-lymphangioma	泌尿紀要 29 :447-450
18	佐藤	1983	8	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 74:1285
19	柴山	1983	32	右	Cavernous hemangioma	臨泌 37 :371-373
20	佐藤	1983	4	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 74:1712
21	古寺	1984	30	右	Cavernous hemangioma	不明
22	泉	1984	34	右	Cavernous hemangioma	泌尿紀要 30 :159-164
23	岩崎	1985	37	左	Hemangioma	臨泌 12:261-263
24	妹尾	1985	13	左	Cavernous hemangioma	Urol Int 42: 309-311
25	金山	1985	9	右右	Cavernous hemangioma Hemangioma	臨泌 39 :707-709
26	妹尾	1986	5	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 77:1222
27	米田	1988	48	右	Venous hemangioma	不明
28	古賀	1988	2	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 79 :1473
29	米田	1989	21	右	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 79 :973
30	江原	1990	42	左	Cavernous hemangioma	西日泌尿 53:1146-1148
31	田中	1990	54	左	Venous hemangioma	日泌尿会誌 81:1272
32	遠藤	1991	4	左	Venous hemangioma	日泌尿会誌 82:1864
33	多田	1992	1	左	Cavernous hemangioma	泌尿器外科 5:607-609
34	松崎	1992	35	右	Venous hemangioma	泌尿紀要 38 :1421-1424
35	恩田	1992	75	右	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 83:426
36	植田	1992	7	左	Cavernous hemangioma	日泌尿会誌 83 :1721
37	吉田	1992	17	右	Arteriovenous hemangioma	泌尿器外科 7:393-396
38	小泉	1996	3	左	Hemo-lymphangioma	泌尿紀要 43 :307-309
39	粟倉	1998	19	左	Cavernous hemangioma	泌尿紀要 44 :750-753
40	自験例	1999	65	右	Racemose hemangioma	

血管腫と組織診断されたのは本邦では文献上,自験例を含めて3例のみであった.よってその臨床経過を報告し文献的考察を加えた.

なお, 当論文の要旨は第170回日本泌尿器科学会関西地方 会において発表した.

対 対

- 1) 山崎雄一郎, 福田知雄: Arteriovenous hemangioma の1例. 皮の臨 **27**: 929, 1985
- 2) 天井 周, 石井久哉, 石黒和守, ほか: Arteriovenous hemangioma (動静脈性血管腫). 皮紀 **89**:

73-79, 1994

- 3) 遠城寺宗知,岩崎 宏,小西陽一,ほか:現代病理学大系,第20巻 軟部腫瘍.飯島宗一,石川栄世,影山圭三,ほか編,第1版,pp 206-207,中山書店,東京,1992
- 4) 伊泊裕子, 中筋一夫, 酒谷省子, ほか: Crisoid Angioma の1例. 皮膚 **38**:612-618, 1996
- 5) 松永若利, 木藤正人:慢性肝炎患者にみられた Acquired Port-Wine Stain. 西日皮膚 **58**:40-43, 1996
- 6) Popper H, Elias H and Petty DE: Vascular pattern of the cirrotic liver. Am J Clin Pathol 22: 717-729, 1952

- 7) Gibson TE: Hemangioma of the scrotum. Urol Cytan Rev 41: 843-845, 1937
- 8) 柴山太郎, 小山雄三, 出口修宏, ほか: 陰嚢内海 綿状血管腫の1例. 臨泌 **37**:371-373, 1983
- 9) 妹尾康平, 小藤秀嗣: 陰嚢内血管腫の1例. 日泌 尿会誌 **77**:1222, 1986
- 10) Keret D, Kam I, Ben-Arieh Y, et al.: Scrotal cavernous hemangioma with a family history of cavernous angiomata. J R Soc Med 83: 402-403,

1990

- 11) Klein TW and Kaplan GW: Klippel-Trenaunay syndrome associated with urinary tract hemangiomas. J Urol 114: 596-600, 1975
- 12) 日江井鉄彦, 杉山寿一, 加藤範夫, ほか: 陰嚢血 管腫の1例. 泌尿紀要 **27**:111-114, 1981

(Received on March 4, 2002) Accepted on May 5, 2002)