

陰嚢内リンパ管腫・血管腫混合型の1例

滋賀医科大学泌尿器科学教室 (主任: 友吉唯夫教授)

小泉 修一, 林田 英資, 濱口 晃一, 小西 平
朴 勺, 岡田 裕作*, 友吉 唯夫

HEMO-LYMPHANGIOMA OF THE SCROTUM: A CASE REPORT

Shuichi KOIZUMI, Hideshi HAYASHIDA, Akikazu HAMAGUCHI, Taira KONISHI,
Kyun Il PAK, Yusaku OKADA and Tadao TOMOYOSHI

A 3-year-old boy was referred because of a painless mass in the left scrotum. On palpation, the mass was discriminated from the testis, epididymis and spermatic cord and showed transillumination. A part of the mass was dark purple in color. Total surgical excision of the mass was performed. The lesion was multicystic (2–15 mm), adherent to the scrotal skin, and easily dissectable from the testicle. Pathological examination revealed lymphangioma as a major component and hemangioma as a minor part. He has been free of recurrent disease for 2 years.

This is the 7th case of hemo-lymphangioma of the scrotum in the Japanese literature.

(Acta Urol. Jpn. 43 : 307–309, 1997)

Key words : Scrotum, Hemo-lymphangioma

緒 言

陰嚢内のリンパ管腫および血管腫は、きわめて稀な良性腫瘍である。今回われわれは、3歳、男児の陰嚢皮下組織より発生したと思われる、血管腫・リンパ管腫の混合型の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：3歳、男児

主訴：左陰嚢無痛性腫脹

既往歴：出生時の気胸

現病歴：1歳6カ月頃、母親が左陰嚢無痛性腫脹に気づき近医受診、陰嚢水腫の診断のもと経過観察されていた。2歳9カ月頃より、陰嚢の一部に血腫様病変を認めたため、1994年5月9日当科紹介受診した。体格栄養中等度で、全身状態に異常なく、左陰嚢に軽度腫脹を認め、腫脹部分には透光性があり、そのやや上部に小指頭大で暗紫赤色の血腫様病変が認められた。陰嚢腫脹の程度に日内変動はなく、精巣は両側とも触知され、発育は年齢的に正常大であった。左陰嚢内腫瘍に対し、1994年6月17日全身麻酔下に手術を施行した。

手術所見：鼠径部に約3cmの皮膚切開を加え、陰嚢内容を創外に脱転した。陰嚢内には、直径約1.5cmから米粒大の多数の嚢胞性病変が認められ、これ

らは陰嚢皮膚と強く癒着していた。また、精巣は精巣鞘膜に包まれたまま容易に剥離可能であった。嚢胞性病変は陰茎根部付近まで連続しており、とくに陰嚢皮膚との剥離が困難であったため一塊として摘出し、陰嚢内にドレーンを留置し手術を終了した。摘出標本は、6×5cmで、直径約1.5cmから米粒大の多数の嚢胞性病変が認められた (Fig. 1)。また、内溶液は黄色透明であった。

病理組織学的所見：HE染色で大部分は薄い壁を有する多くの嚢胞より成っていた。内腔はすべて1層の内皮細胞で被覆されており、リンパ管腫と診断した (Fig. 2)。また、一部に内皮細胞の厚い、拡張した血管腔を認め、血管腫も存在していることがわかったので (Fig. 3)、血管腫を合併したリンパ管腫と診断した。また、陰嚢皮膚と強く癒着していた所見より、発

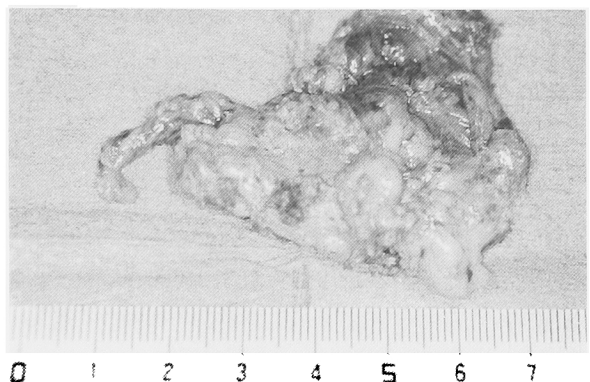


Fig. 1. The resected tumor consisted of small multiple cysts.

* 現：京都大学医学部泌尿器科学教室



Fig. 2. Microscopic findings showed multiple and occasional cystic lymphatic vessels with foci of lymphoid tissue (arrow). (H & E, $\times 100$)

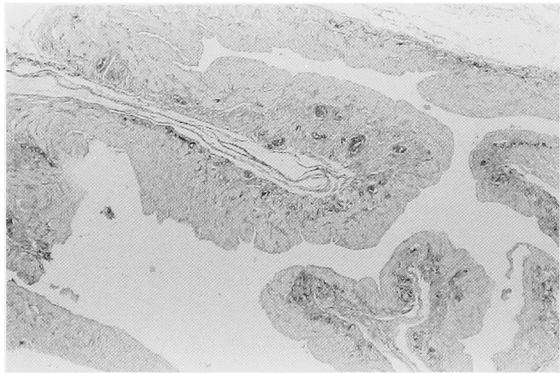


Fig. 3. Microscopic findings showed dilated veins. (H & E, $\times 40$)

生部位は陰囊皮下組織と思われた。術後経過良好で、一過性に陰囊皮膚にリンパ液漏出によると思われる炎症所見を認めたが、抗生剤内服により症状は軽快し、2年経過した現在再発を認めていない。

考 察

リンパ管腫は、リンパ組織の先天性奇形と考えられており¹⁾、約95%が頸部、腋窩に発生するとされている²⁾。また、血管腫は、血管組織からなった腫瘍様の先天性組織奇形といわれ³⁾、頭頸部、肝臓に好発するとされている⁴⁾。陰囊にリンパ管腫や血管腫が発生するのは稀であり、さらに血管腫とリンパ管腫との混在はきわめて稀である。血管腫が生殖器系領域に発生するのは、全血管腫の約1%から2%といわれている⁵⁾。われわれが調べたかぎりでは、本邦において陰囊内血管腫はリンパ管腫との混合型を除くと24例⁶⁾、リンパ管腫は4例のみ⁷⁾であり、リンパ管腫血管腫の混合型は宮川ら⁸⁾の報告以来江尻ら⁹⁾が3例を加え、さらに伊藤ら¹⁰⁾および泉ら¹¹⁾の報告を認め、自験例は7例目と思われる。発症年齢は2歳から31歳(平均14.1歳)であるが、受診の数年前から陰囊内の腫瘍に気づいていた症例も報告されている¹⁰⁾。大半

のリンパ管腫および血管腫は、ともに生下時にはすでに存在しており、成長とともに腫瘍が発育するという報告^{1,12)}もあることから、比較的年長の症例でも実際には幼少時にすでに存在していたと考えられる。主訴は7例中、5例が無痛性の陰囊内腫瘍で、2例に疼痛を伴っていた。患側は、右側が5例、左側が2例であった。診断上の特徴は、陰囊皮膚の青色様変化を伴う陰囊内腫瘍を認めれば、血管腫の可能性が考えられ、透光性の腫瘍を認めればリンパ管腫の存在を考慮すべきである。鑑別診断としては、陰囊水腫、精液瘤や鼠径ヘルニアがあげられる¹⁾。治療は、癒着している部分の陰囊皮膚を合併切除する腫瘍摘出術が原則であり、残存させると再発の危険性がある¹⁾。本邦においては7例中1例のみ精巣腫瘍との鑑別診断が困難であり、高位精巣摘除術を受けているが⁹⁾、他はすべて腫瘍摘出術が行われている。後腹腔内リンパ管腫では、発見時にすでに大きい腫瘍を形成していることもあり、摘出術後に放射線照射を追加したほうが、再発予防になるという報告も認められたが¹³⁾、陰囊内リンパ管腫では精巣機能を考慮した再発の有無は比較的容易に診断できるので施行すべきではないと思われる。ほかに、硬化療法、電気焼灼や寒冷療法の報告もあるが、期待するほどの治療効果は認められていない¹⁴⁾。再発症例の報告がないことより、腫瘍を治癒切除するこよが最良の治療であると思われた。

結 語

3歳男児に発生した陰囊内血管腫 リンパ管腫の混合型の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告した。

本論文の要旨は第149回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Merka ST, Bhatt KS and Wood FW: Cystic lymphangioma of the scrotum: a case report. *J Urol* **131**: 1179-1181, 1984
- 2) Singh S, Baboo ML and Pathak IC: Cystic lymphangioma in children: report of 32 cases including lesions at rare sites. *Surgery* **69**: 947-951, 1971
- 3) 多田 実, 武村 聡, 滝本至得, ほか: 精巣海綿状血管腫の1例. *泌尿紀要* **35**: 1969-1971, 1989
- 4) Enzinger FM and Sharon WW: Benign tumors and tumorlike lesions of blood vessels. In: *Soft tissue tumor*. edited by Enzinger FM and Sharon WW. 3rd ed., pp 579-626, Mosby Press, St. Louis, 1995
- 5) Alter GJ, Trengove-Jones G and Horton CE Jr.: Hemangioma of penis and scrotum. *Urology* **42**: 205-208, 1993

- 6) 松崎純一, 千葉喜美男, 川崎千尋, ほか: 精巣腫瘍と鑑別困難であった陰嚢内血管腫の1例. 泌尿紀要 **38**: 1421-1424, 1992
- 7) 竹山政美, 高 栄哲, 近藤宣幸, ほか: 陰嚢内リンパ管腫の1例. 日泌尿会誌 **79**: 1258-1260, 1988
- 8) 宮川光生, 永野俊介, 園田孝夫: 陰嚢皮下組織より発生した血管・リンパ管混合腫の1例. 泌尿紀要 **12**: 1129-1132, 1966
- 9) 江尻 進, 川口正一, 松原藤継: 辜丸周囲副腎遺残を伴った陰嚢内血管腫 リンパ管腫の1例. 泌尿紀要 **22**: 515-519, 1976
- 10) 伊藤康久, 藤本佳則, 徳山宏基, ほか: 陰嚢内の血管腫 リンパ管腫混合型の1例. 泌尿紀要 **29**: 447-450, 1983
- 11) 泉 武寛, 大前博志, 原 信二, ほか: 陰嚢内および陰茎の血管腫 リンパ管腫混合型の1例. 泌尿紀要 **31**: 159-164, 1985
- 12) Ferrer FA and McKenna: Cavernous hemangioma of the scrotum: a rare benign genital tumor of childhood. J Urol **153**: 1262-1264, 1995
- 13) Koshy A, Tandon RK, Kapur BM, et al.: Retroperitoneal lymphangioma. a case report with review of the literature. Am J Gastroenterol **69**: 485, 1978
- 14) Mulcahy JJ, Schileru G, Donmezer MA, et al.: Lymphangioma of scrotum. Urology **14**: 64-65, 1979

(Received on October 28, 1996)
(Accepted on December 19, 1996)