

免疫組織化学的に検索した陰茎海綿状血管腫の1例

滋賀医科大学医学部泌尿器科学講座 (主任: 友吉唯夫教授)

金 哲将, 岡田 裕作, 小西 平

神波 照夫, 朴 勺, 友吉 唯夫

滋賀医科大学医学部病理学第一講座 (主任: 服部隆則教授)

九 嶋 亮 治

CAVERNOUS HEMANGIOMA OF THE PENIS:
REPORT OF A CASE IMMUNOHISTOCHEMICALLY STUDIEDChol Jang Kim, Yusaku Okada, Taira Konishi,
Teruo Kounami, Kyun Pak and Tadao Tomoyoshi*From the Department of Urology, Shiga University of Medical Science*

Ryouji Kushima

From the First Department of Pathology, Shiga University of Medical Science

An 18-month-old boy was admitted in April, 1988 because of a penile mass which had been first noted at the age of one month. From nine months after birth, transient bleeding from the mass accompanied by pain had been occasionally noted. At the age of 14 months, the mass seemed to grow markedly. On physical examination, there was an irregularly shaped mass on the right side of the prepuce. It was palpated subcutaneously, soft in consistence and was 10 mm in diameter. It had a light-purple color.

Upon surgery, the mass was found not to have originated from the cavernous body of the penis, so that it could be excised without difficulty. Histopathological diagnosis was cavernous hemangioma. Electron microscopic examination revealed findings suggestive of newly formed blood vessels such as abnormal cuboidal shape of endothelial cells and a high nucleocytoplasmic ratio. Immunohistochemical examination of factor VIII-related antigen was inhomogeneously positive in vascular endothelial cells. To our knowledge, this is the twenty-eighth case reported in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 36: 1085-1088, 1990)

Key words: Cavernous hemangioma, Penile tumor, Immunohistochemistry

緒 言

陰茎より発生する腫瘍の多くは上皮由来であり、深部組織から発生するものは稀である¹⁾。とくに、陰茎血管腫はきわめて少なく、本邦報告例は27例にすぎない²⁻⁶⁾。最近われわれは、陰茎血管腫の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: 1歳6カ月, 男子
主訴: 陰茎腫瘍
現病歴: 生後1カ月に、陰茎包皮の腫瘍に気づかれていた。生後9カ月頃より、時々腫瘍の一部より出血があり疼痛を伴うようになった。1歳2カ月頃より腫

瘍の増大傾向著明となり、近医受診し、当科紹介となった。

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現症: 胸腹部異常なく、体表リンパ節を触知しなかった。陰茎部以外に、異常腫瘍、色素沈着を認めなかった。包皮右側に直径 10 mm, 表面凹凸不整、淡紫色の柔らかい腫瘍が存在した (Fig. 1)。

血液諸検査および尿検査等にて、とくに異常所見を認めなかった。

以上より、陰茎包皮に発生した血管腫を疑い、1988年4月8日陰茎腫瘍切除術を施行した。腫瘍の輪郭に沿って切除すると、腫瘍は陰茎海綿体と無関係であり、容易に切除しえた。

病理組織学的所見: 重層扁平上皮下に、内に赤血球



Fig. 1. Penile tumor with an irregular surface in the right region of the prepuce.

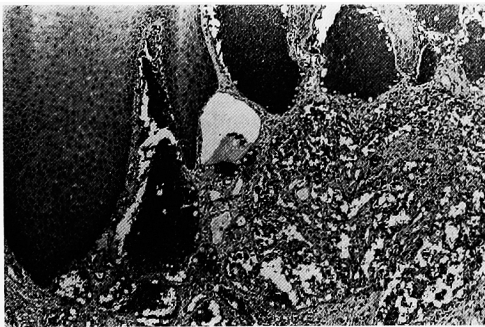


Fig. 2. Under the epidermis, there are mature capillary vessels and immature capillary vessels (right). H.E. $\times 40$.

を含み、1層の内皮細胞よりなる拡張した多数の cavernous vein が確認された。病理組織診断は、海綿状血管腫であった (Fig. 2)。

電子顕微鏡所見・血管内皮細胞は正常より立方化しており、核細胞質比も高く新生血管が示唆される所見であった。間質には、周皮細胞、線維芽細胞が認められた (Fig. 3)。

Ⅷ因子関連抗原による免疫組織化学所見・血管内皮細胞全体が陽性所見を示すのではなく、陽性像を示す部位と陰性像を示す部位とが確認された (Fig. 4)。

術後、機能障害、変形などは認めなかった。

考 察

血管腫が、真の腫瘍であるのか、過誤腫かについては議論があるが、後者と考えるものが多い⁷⁾。また、



Fig. 3. Electron microscopic examination of the penile hemangioma shows findings suggestive of newly formed blood vessels. Note presence of erythrocytes in the lumen, abnormal cubic shape of endothelial cells and a high nucleocytoplasmic ratio. Endothelial cell (E). Pericyte (P). Fibroblast (F).

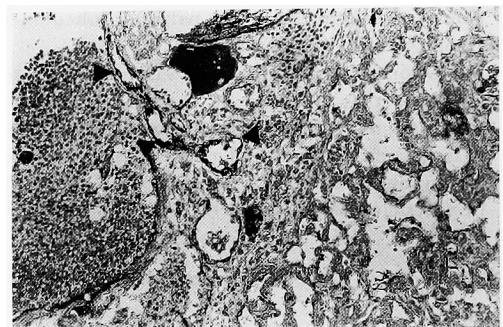


Fig. 4. By means of the peroxidase-antiperoxidase technique using anti-Factor VIII associated antigen, mature capillary vessels (arrows) are positive, but, immature ones (right) are negative. $\times 100$.

その発生部位については、身体各部に生ずるが、皮膚皮下軟部組織のほか、肝や脳、脊髄などが好発部位としてあげられている⁹⁾。血管の豊富な陰茎に、血管腫の発生の少ない理由について、Rabson⁹⁾は、剖検時においても陰茎はまれにしか検索されないこと、および陰茎海綿体は、線維筋性の壁で構成されており、こために血管腫の発生が抑えられ、血管の豊富な肝臓の sinusoid が毛細管的性状で構成されて血管腫の発生がかなりの頻度であることとは対照的であると述べて

Table 1. 治療法

切除	17
凍結治療	2
電気凝固	1
Co ⁶⁰ 照射	1
³² Pろ紙貼付	1
切除・電気凝固	1
切除・皮膚移植	1
YAGレーザー腫瘍焼灼	1
不明	3

いる。

初発時と治療時年齢について、それぞれ記載のあった22例と28例について検討した。年齢分布は、どちらも0歳より84歳にまでわたるが、平均年齢は、初発時年齢が15.8歳、治療時年齢が24.5歳となり、比較的若年者に多い疾患といえることができる。

陰茎血管腫の発生部位を亀頭部とそれ以外の部位に分けると、亀頭部に発生したものが約75%をしめる。また、手術時または造影検査により、陰茎血管腫と海綿体との関係について、その連続性が示されている報告は6例であった。松木¹⁰⁾は、陰茎海綿体、尿道海綿体および亀頭部海綿体は組織学的にも発生学的にも異なった性状をもって陰茎を構成すると述べている。このことより、山崎ら¹¹⁾は、これらの構造の合流部である亀頭部に形成異常が生じやすく、血管腫が発生しやすいと推測している。症状に関しては、腫瘍以外の症状を欠くものが多いが、約30%の症例に、出血、疼痛、感染、排膿、尿線の屈曲、勃起時疼痛などの症状がみられている。

治療法は、28例中17例に、腫瘍切除のみが施行されている (Table 1)。再発症例が報告されていないことより、切除可能であり、なおかつ形態学的にも問題を残さなければ、最も有効な治療法と考えられ、腫瘍と海綿体の連続が確認された場合でも、腫瘍切除により良好な結果が得られている。2例に対して、放射線治療が施行されているが、その結果については不明である^{12,13)}。また、cryosurgeryが2例に施行され、1例は有効¹¹⁾、もう1例は無効²⁾と報告されている。法貴¹⁴⁾の報告によれば、海綿状血管腫は、cryosensitivityが最も良い疾患に分類されているのに加え、陰茎血管腫の場合、病変が表在性で範囲が比較的容易に感知される場合が多いので、今後検討されるべき治療法であると思われる。1例に対し、YAGレーザーによる焼灼が行われ、有効であると報告されている³⁾。

Table 2. 病理組織診断

海綿状血管腫	11
血管腫	3
単純性血管腫	1
毛細管血管腫	1
良性血管内皮腫	1
静脈性血管腫	1
血管腫・リンパ管腫混合型	1
不明	9

(診断名は報告者に準じた)

病理組織診断では、28例中19例に記載があり、11例は海綿状血管腫であった (Table 2)。

Jaffe¹⁵⁾は、血管内皮細胞を用いた cell culture study で、血管内皮細胞がⅧ因子関連抗原を合成分泌することを証明している。一方 Mukai ら¹⁶⁾は、免疫組織学的検索で同抗原の血管内皮における特異的局在を示しており、血管内皮細胞のマーカーとして病理診断への応用の可能性を示唆している。自験例についての検索では、血管内皮細胞全体が陽性所見を示すものと陰性像を示すものとが確認された。向井と高桑¹⁷⁾は、かなり分化した血管内皮細胞のみにⅧ因子関連抗原は局在すると指摘しており、同一の血管腫内部において分化度の異なる細胞が存在することが指摘された。海綿状血管腫の内皮細胞の電子顕微鏡所見は、正常血管内皮細胞と同様の所見を示す¹⁸⁾。自験例の検索では、内皮細胞は正常より立方化しており、核細胞質比も高く新生血管をおもわせる所見が得られた。これは、血管腫の中の増生部の一部を示すものと考えられた¹⁹⁾。このように、Ⅷ因子関連抗原による免疫組織化学的検索や電子顕微鏡的検索は、血管系腫瘍が内皮細胞由来か周皮細胞由来かの確定を含めて、血管系腫瘍の診断に有用であると考えられた。

結 語

陰茎腫瘍を主訴とした1歳6カ月男子にみられた陰茎海綿状血管腫の1例を経験し、免疫組織化学的検索をおこなったので、若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Gibson TE: Angioma of glans penis. Report of a case. *J Urol* **20**: 501-503, 1928
- 2) 小泉雄一郎, 石塚源造, 市川晋一, 松崎 章, 柳田真理子: 亀頭部血管腫の3例. 茨城県臨床医学雑誌 **20**: 181, 1984
- 3) 野口正典, 大塚 担, 野田進士, 江藤耕作, 谷

- 村 晃：尿道血管腫を合併した陰茎血管腫の1例. 西日泌尿 **47**: 153-159, 1985
- 4) 土井康裕, 松井孝之, 竹山政美, 藤岡秀樹, 小出卓生：陰茎血管腫の1例. 日泌尿会誌 **78**: 1656, 1987
- 5) Senoh K, Miyazaki T, Kikuchi I, Sumiyoshi A and Kohga A: Angiomatous lesions of glans penis. *Urology* **17**: 194-196, 1981
- 6) Maeda K: A successful case of urethral reconstruction in a child with persistent urethral bleeding due to an extensive cavernous haemangioma. *Br J Plast Surg* **37**: 536-538, 1984
- 7) Willis RA: Angiomas: Tumors and tumor-like overgrowths of vascular tissue. In: *Pathology of tumors*, Edited by Willis RA. 4th ed., pp. 718-735, Butterworths Company, London, 1967
- 8) 丸山孝士：非上皮性腫瘍. 新病理学総論, 武田勝男編, 第13版, pp. 461-506, 南山堂, 東京, 1981
- 9) Rabson SM: Angioma of corpus cavernosum penis. *J Urol* **45**: 111-117, 1941
- 10) 松木繁雄：陰茎の発生 特に包皮と海綿体について. 日大医誌 **20**: 2333-2339, 1961
- 11) 山崎 章, 河島長義, 西村一男, 佐々木美晴, 中川 隆：凍結治療をおこなった陰茎血管腫の1例. 泌尿紀要 **24**: 325-332, 1978
- 12) 重松 俊, 佐藤 威：稀少な亀頭海綿様血管腫の1例. 臨床皮泌 **14**: 839-842, 1960
- 13) 高井修道, 清水光博, 森田茂豊, 島林昭吾：症例. 日泌尿会誌 **54**: 456, 1963
- 14) 法貴 昭：神戸大学凍結外来における治療方針. 耳鼻臨床 **68**: 1522-1524, 1975
- 15) Jaffe EA: Synthesis of factor VIII antigen by cultured human endothelial cells. *Ann NY Acad Sci* **240**: 62-69, 1975
- 16) Mukai K, Rosai J and Burgdorf WHC: Localization of factor VIII-related antigen in vascular endothelial cells using an immunoperoxidase method. *Am J Surg Pathol* **4**: 273-276, 1980
- 17) 向井万起男, 高桑俊文：免疫組織化学及び組織化学的アプローチ. 臨整外 **18**: 831-837, 1983
- 18) Kojimahara M: Ultrastructural study of hemangiomas. 4. Cavernous hemangioma of the liver. *Acta Pathol Jpn* **36**: 1477-1485, 1986
- 19) 水無瀬昂：支持組織の腫瘍. 電顕腫瘍病理学, 小野江為則編, pp. 27-109, 南山堂, 東京, 1982

(Received on December 5, 1989)
(Accepted on February 15, 1990)