

限局性尿道アミロイドーシスの1例

和歌山労災病院泌尿器科（部長：藤永卓治）

小川 隆 敏

上門 康 成

藤永 卓 治

和歌山労災病院中検病理（部長：楠山洋司）

楠山 洋 司

A CASE OF LOCALIZED AMYLOIDOSIS OF THE URETHRA

Takatoshi OGAWA, Yasunari UEKADO and Takuji FUJINAGA

*From the Department of Urology, Wakayama Rosai Hospital**(Chief: Dr. T. Fujinaga)*

Yoji KUSUYAMA

*From the Department of Pathology, Wakayama Rosai Hospital**(Chief: Dr. Y. Kusuyama)*

A case of localized amyloidosis of the urethra is reported. A 42-year-old man visited with the complaint of urethral discharge and urethral tumor on May 24, 1985. A small fingertip sized, elastic hard mass was present on the left side of the external urethral meatus. Cold cup biopsy of the urethral tumor was done. Histological examination of the tumor showed amorphous eosinophilic tissue staining. Green birefringence indicating amyloidosis by Congo red staining was observed under polarized light microscope.

Since the patient's symptoms were minimal, no specific therapy was instituted.

Key words: Amyloidosis, Urethra

緒 言 症 例

アミロイドーシスは、本邦では非常にまれな疾患であると考えられてきたが、近年次第に増加する傾向が認められる。しかし、その大部分は全身性アミロイドーシスであり、ひとつの器官にのみ限局するものは少ない。尿路にのみ限局するものとしては、尿管、膀胱などに発生した限局性アミロイドーシスの報告が散見されるが、尿道に限局したアミロイドーシスの報告はまれである。今回、われわれは、限局性尿道アミロイドーシスの1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて記載する。

患者：42歳，男性，会社員
初診：1985年5月24日
主訴 尿道分泌物，尿道腫瘍
既往歴：20歳，淋菌性尿道炎
現病歴：1983年頃より，ときどき尿道分泌物があるのに気づいていたが，放置していた。1985年2月頃より，尿道分泌物が増加し，近医を受診。尿道炎の診断をうけ，化学療法により分泌物が減少したが，同年4月頃より外尿道口部の腫瘍に気づき当科を受診した。なお，頻尿，排尿困難，排尿痛および発熱などの症状は認めなかった。

初診時現症：体格，中等度，栄養，良好。血圧 120

/78 mmHg. 脈拍 60/min, 整. 眼瞼結膜, 貧血なし. 胸腹部理学的所見, 異常なし. 表在リンパ節, 触知せず.

局所所見: 外尿道口部左側に, 小指頭大, 弾性硬の腫瘍を触知. 外尿道口をひろげて観察すると, 舟状窩左側壁に若干血管に富む部分を見とめ, 同部に軽度の膨隆がみられた (Fig. 1).

検査成績 一般検血; WBC 4,700/mm³, RBC 493 × 10⁴/mm³, Hb 15.5 g/dl, Ht 46.5%, platelet 22 × 10⁴/mm³. 血液化学; BUN 20 mg/dl, creatinine 0.8 mg/dl, uric acid 6.4 mg/dl, Na 143 mEq/l, K 3.9 mEq/l, Cl 108 mEq/l, Ca 4.43 mEq/l, ALP 100 U/l, GOT 21 Ka.U., GPT 14 Ka.U., LDH 318 U/l, γ -GTP 11 U/l.

蛋白分画; T.P. 7.30 g/dl, Alb 67.8%, α_1 -G 2.0%, α_2 -G 8.4%, β -G 8.9%, γ -G 12.7%.

免疫グロブリン; IgG 1,220 mg/dl, IgA 175 mg/dl, IgM 165 mg/dl.

尿中 Bence-Jones 蛋白; 陰性.

検尿; pH 6.5. 蛋白, 陰性. 糖, 陰性. 赤血球(-). 白血球 0~1/hpf. 細菌 (-).

胸部レントゲン; 異常なし.



Fig. 1. Gross appearance of the urethral tumor

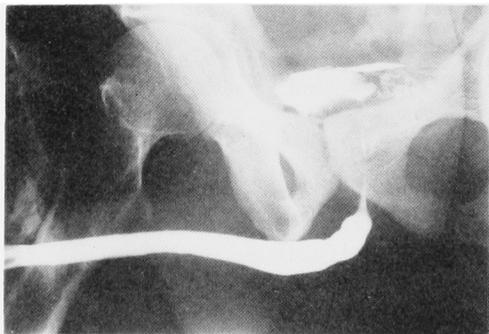


Fig. 2. Urethrogram

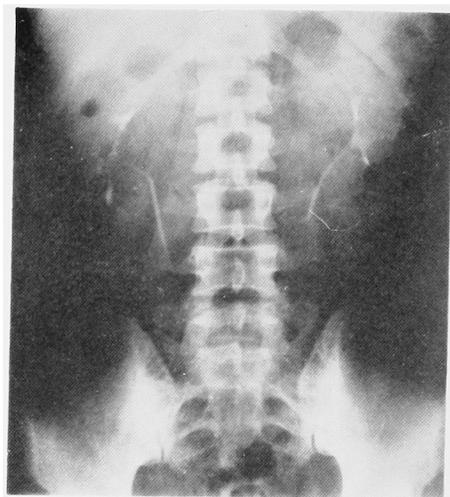


Fig. 3. IVP

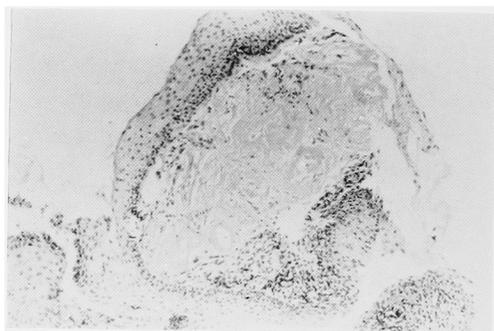


Fig. 4. Microscopic appearance of the tumor (HE stain)

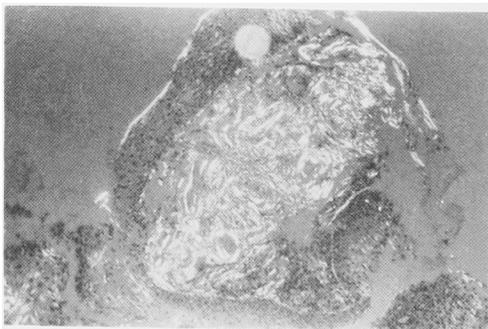


Fig. 5. Green birefringence by congo red staining was observed under polarized light microscope

尿道造影; 外尿道口および他の尿道に狭窄などの異常所見を認めず (Fig. 2).

IVP; 上部尿路に異常所見を認めず (Fig. 3).

生検所見; cold cup にて, 尿道側より腫瘍を生検

した結果、組織学的には HE 染色にて、尿道粘膜下に軽度の炎症性変化と、好酸性物質の沈着がみられ (Fig. 4)、コンゴレッド染色では、この物質は赤紅色に染色され、偏光顕微鏡下で黄緑色の複屈折を示し、アミロイドと診断された (Fig. 5)。

後日施行された直腸生検では、アミロイドの沈着を認めず、諸検査成績より、厚生省特定疾患アミロイドーシス調査研究班によるアミロイドーシスの分類のうち、限局性アミロイドーシスに相当するものと考えられた。

抗生物質、抗浮腫剤の投与により、外尿道口部の腫瘤は若干の縮小傾向を示し、初診後6カ月の現在、排尿困難などの症状もないため、経過観察中である。

考 察

アミロイドーシスは、線維構造をもつ特異な蛋白「アミロイド」が細胞外に沈着する原因不明の代謝性疾患である。わが国においては、1976年度厚生省特定疾患アミロイドーシス調査研究班により、「アミロイドーシス診断の手引」が発表されており、その分類は Table 1 のごとくである。

Table 1. Classification of amyloidosis

- 1 原発性アミロイドーシス
 - a. 免疫グロブリン異常を伴うもの
 - b. その他
2. 多発性骨髄腫に合併するアミロイドーシス
3. 続発性アミロイドーシス
4. 分類困難なアミロイドーシス
5. 限局性アミロイドーシス
6. 遺伝性アミロイドーシス

Table 2. Localized amyloidosis of urethra in Japan

報告者	年齢	性別	主 訴	部 位	淋疾	治 療
1. 松下ら (1976)	27	♂	血 尿	前部尿道	(-)	TUR
2. 奥村ら (1979)	42	♂	血 尿 排尿困難	前部尿道	(+)	陰莖切断術
3. Fujimura (1981)	50	♂	血性分泌物 排尿困難	前部尿道	(-)	尿道切除
4. Fujimura (1981)	63	♂	尿道腫瘍 排尿困難	前部尿道	(-)	尿道切除
5. 山内ら (1981)	78	♂	排尿困難 頻 尿	前部尿道	(-)	TUR
6. 自 験 例	42	♂	尿道分泌物 尿道腫瘍	舟状窩	(+)	経過観察中

Table 3. Localized amyloidosis of urethra in Europe and U.S.A.

No.	報告者(年度)	年齢	性別	主 訴	淋疾の既往	発生部位	治 療
1	Tilp, A. (1909)	58	♂		(-)	前部尿道	(剖検例)
2	Herxheimer, G. (1913)	27	♂	排尿困難	(-)	前部尿道	腫瘍切除
3	Albertini, A. (1925)	72	♂	排尿困難	(+)	前部尿道	尿道切除
4	Maresh, R. et al. (1931)	62	♂	排尿困難 尿道出血	(+)		(剖検例)
5	Maresh, R. et al. (1931)	42	♂		(-)		
6	Chwalla, R. (1932)	57	♂	血尿・頻尿 排尿困難	(-)	膀胱頸部 後部尿道	膀胱切開による腫瘍切除
7	Schmid, K.O. (1956)	55	♂	排尿困難	(+)	前部尿道	(剖検例)
8	Ullmann, A.S. et al. (1964)	62	♂	血尿・頻尿 排尿困難	(+)	尿道部尿道	生 検
9	Branson, A.D. et al. (1969)	47	♂	高血圧精査	(-)	前部尿道	生 検 尿道ブジー
10	Gerami, S. et al. (1970)	60	♂	血 尿 排尿困難	(+)	前部尿道 膀胱	尿道切除
11	Carris, C.K. et al. (1976)	63	♂	尿道分泌物 排尿困難	(-)	前部尿道	TUR
12	Ordóñez, N.G. et al. (1979)	37	♂	尿道出血 腫	(-)	前部尿道 (舟状窩)	腫瘍切除
13	Constantian, H.M. et al. (1980)	27	♂	排尿困難 腫瘍・尿道出血	(-)	前部尿道	内尿道切開 nitrofurazone
14	Bodner, H. et al. (1981)	21	♂	尿嚢嚢位・腫瘍 射精時尿道痛	(+)	前部尿道 龜 頭	腫瘍切除 一尿道切除
15	Vasudevan, P. et al. (1981)	61	♂	排尿困難 頻 尿	(-)	前部尿道	尿道切除
16	Walzer, Y. et al. (1983)	32	♂	血 尿	(-)	前部尿道	経過観察
17	Kaisary, A.V. (1985)	82	♂	排尿困難 頻 尿	(-)	前部尿道	腫瘍切除

本症例は、慢性炎症、悪性腫瘍などによる続発性の要素がなく、免疫グロブリン異常、多発性骨髄腫の所見もなく、直腸生検でのアミロイド沈着も陰性であったことなどにより、限局性尿道アミロイドーシスと考えられた。

限局性尿道アミロイドーシスの報告は、本邦症例としては、1976年松下らの報告にはじまり、これまで5例が報告されており、本症例は6例目に相当するものと考えられる²⁻⁵⁾ (Table 2)。

一方、外国では1909年 Tilp の報告を第1例とし、これまで17例の報告がみられる⁶⁻²¹⁾ (Table 3)。

この23例についてまとめてみると、年齢は、21歳から82歳で、20歳以上の各年齢層にほぼ均一に分布している。性別は、23症例全例男性である。主訴は、排尿困難がもっとも多く、血尿、尿道分泌物、腫瘍がこれについている。発生部位は、後部尿道が2例で、ほとんどの症例が前部尿道発生である。

淋疾の既往が6例にみられ、淋菌性尿道炎と本症との関連性を示唆する報告もみられるが、その因果関係については明らかではない。

本症が臨床的に重要であるのは、尿道癌との鑑別であり、ほとんどの症例では、術前あるいは術中の生検により本症の診断を確定しているが、術後の病理組織学的検索で明らかとなった症例もわずかにみられることより、本症の診断においては、本症の可能性を疑うことと、生検により本症を確定することが必須であると思われる。

治療法は、腫瘍の拡がり、尿道狭窄の程度などにより方法は異なるが、Walzer ら²⁰⁾は、本症の予後が良好なこと、Strong ら²²⁾の17年間不変であった膀胱アミロイドーシスの症例があることなどを根拠として、症状が軽度で、尿道狭窄がなければ、とくに治療を必要としないと述べている。しかし、Bodner ら¹⁸⁾は、腫瘍切除後に増大をきたし、尿道切除を必要とした症例を報告している。これらのことより、本症の予後は、おおむね良好と考えてよいが、注意深い経過観察が必要であると思われる。

結 語

限局性尿道アミロイドーシスの1例を経験したので、若干の文献の考察を加えて記載した。

稿を終るにあたり、御校閲を賜った和歌山県立医大大川順正教授に深謝いたします。なお、本論文の要旨は第112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) 荒木淑郎・永田仁郎：全身性アミロイドーシスの臨床。病理と臨床 3：177～184, 1985
- 2) 松下高暁・高村孝夫・三橋公美：限局性尿道アミロイド症の1例。臨泌 30：537～540, 1976
- 3) 奥村秀弘・井本 卓・牧浦 洋・松本慶三・山辺博彦：尿路に限局してみられた amyloidosis の2症例，①尿管②尿道。日泌尿会誌 70：1031, 1979
- 4) Fujime M, Tajima A, Minowada S, Kobayashi K, Murahashi I, Isurugi K and Aso Y：Localized amyloidosis of urethra. Report of two cases. Eur Urol 7：189～192, 1981
- 5) 山内民男・松田公志・飛田収一・真田俊吾・高橋陽一：尿道アミロイドーシスの1例。日泌尿会誌 72：385, 1981
- 6) Tilp A：Ueber lokales tumorförmiges Amyloid der Harnröhre. Centralbl f allg Path u path Anat 20：913～916, 1909
- 7) Herxheimer G and Reinhart A：Ueber lokale Amyloidosis (insbesondere die sogenannten Amyloidtumoren). Berl Klin Wschr 50：1648～1654, 1913
- 8) von Albertini A：Uber lokales Amyloid der Urethra. Frankf Z Path 33：248～257, 1925
- 9) Maresh R and Chiari H：Amyloid im Bereiche des Gliedes. in Handbuch der speziellen pathologischen Anatomie und Histologie vol 6 p.197, Springer Berlin, 1931
- 10) Chwalla R：A case of amyloidosis at the bladder neck resembling a tumor. Urol Cutan Rev 36：381～384, 1932
- 11) Schmid KO：Lokalisierte Amyloidose (Paramyloidose) der Harnrohre. Zugleich ein Beitrag zur Kenntnis der Pseudotumoren der Urethra Krebsarzt 11：329～338, 1956
- 12) Ullman AS, Fine G and Johnson AJ：Localized amyloidosis (amyloid tumor) of the urethra. J Urol 92：42～44, 1964
- 13) Branson AD, Kiser WS, Gifford RW Jr and Tung KSK：Localized amyloidosis of the urethra: Report of a case. J Urol 101：68～70, 1969
- 14) Gerami S, Easley GW and Payan H Pri-

- mary localized amyloidosis of the urethra and bladder (amyloidoma).
Am Surgeon 36: 375~377, 1970
- 15) Carris OK, McLaughlin AP III and Gittes RF: Amyloidosis of the lower genitourinary tract. J Urol 115: 423~426, 1976
- 16) Ordonez NG, Ayala AG, Gresik MV and Bracken RB: Primary localized amyloidosis of male urethra (amyloidoma). Urology 14: 617~619, 1979
- 17) Constantian HM and Wyman P: Localized amyloidosis of the urethra: Report of a case. J Urol 124: 728~729, 1980
- 18) Bodner H, Retsky MI and Brown G: Primary amyloidosis of glans penis and urethra: Resection and reconstruction. J Urol 125: 586~588, 1981
- 19) Vasudevan P, Stein AM, Pinn VW and Rao CN: Primary amyloidosis of urethra. Urology 17: 181~183, 1981
- 20) Walzer Y, Bear RA, Colapinto V, McCallum R and Lang A. Localized amyloidosis of urethra. Urology 21: 406~407, 1983
- 21) Kaisary AV: Primary localized amyloidosis of the urethra. Eur Urol 11: 209, 1985
- 22) Strong GH, Kelsey D and Hoch W: Primary amyloid disease of the bladder. J Urol 112: 463~466, 1974

(1986年1月4日受付)