

結節性多発動脈炎の関連が示唆された 異時性両側精巣梗塞の1例

黒川 真行¹, 内藤 整¹, 一柳 統¹, 須藤 文²
黒田 悠太¹, 櫻井 俊彦¹, 西田 隼人¹, 川添 久¹
加藤 智幸¹, 長岡 明¹, 伊藤 裕美¹, 山川 光徳²
土谷 順彦¹

¹山形大学医学部腎泌尿器外科学講座, ²山形大学医学部病理診断学講座

ASYNCHRONOUS BILATERAL TESTICULAR INFARCTION WITH SUSPECTED POLYARTERITIS NODOSA: A CASE REPORT

Masayuki KUROKAWA¹, Sei NAITO¹, Osamu ICHIYANAGI¹, Aya SUTO²,
Yuta KUROTA¹, Toshihiko SAKURAI¹, Hayato NISHIDA¹, Hisashi KAWAZOE¹,
Tomoyuki KATO¹, Akira NAGAOKA¹, Hiromi ITO¹, Mitsunori YAMAKAWA²
and Norihiko TSUCHIYA¹

¹The Department of Urology, Yamagata University, Faculty of Medicine

²The Department of Pathological Diagnostics, Yamagata University, Faculty of Medicine

This report documents a case of asynchronous bilateral testicular infarction. The patient was a 42-year-old man who presented with left testicular pain and swelling. He had a past history of right idiopathic testicular infarction and underwent a right orchiectomy 6 years ago. He also had received treatment for 5 years for suspected polyarteritis nodosa (PAN). The left scrotal pain persisted for a week and left orchiectomy was performed. Pathological evaluations demonstrated a benign testis with testicular hemorrhage and chronic vasculopathy. There was no fibrinoid necrosis of medium-size vessel walls which characterizes PAN. In this report, we review the pathogenesis, risk of contralateral testicular infarction, and management of testicular infarction.

(Hinyokika Kiyō 62 : 657-660, 2016 DOI: 10.14989/ActaUroJap_62_12_657)

Key words : Testicular infarction, Bilateral, Polyarteritis nodosa

緒 言

精巣梗塞は通常捻転や外傷後に二次的に発症することが多い。稀な原因として、血管炎、特に結節多発動脈炎 polyarteritis nodosa (PAN) による精巣梗塞の報告が散見される¹⁾。精巣梗塞の既往を有し PAN の疑いで加療中に、対側の特発性精巣梗塞により両側精巣摘除に至った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 : 42歳, 男性 (既婚, 子供1人)

主 訴 : 左陰嚢痛, 陰嚢腫大

既往歴 : PAN 疑い, 高血圧

生活歴 : 喫煙 5~10本/日×20年

現病歴 : 9年前から、両肘に痲皮様の圧痛を伴う皮疹が出現し、徐々に拡大していた。臨床経過の詳細は不明だが、6年前に右側特発性精巣梗塞で右精巣摘除術を施行した。半年後より、両下肢の浮腫を認め、皮

疹は潰瘍化し、腎機能障害や高血圧を併発した。皮膚生検では真皮下層から脂肪織の深さの血管に非特異的な血管炎の所見を認めた。PAN に特徴的なフィブリノイド壊死の所見はないものの臨床上 PAN 疑いの診断となり免疫抑制剤による加療を開始したところ、皮疹と腎機能は改善を認めた。直近では prednisolone 10 mg, Mizoribine 150 mg による加療が行われていた。2015年8月左陰嚢の疼痛と腫大を自覚し近医を受診した。精巣上体炎の診断で levofloxacin 500 mg を処方された。1週間後も症状が改善しないため当科を受診した。精巣上体炎の診断で抗生剤を継続したが症状が改善しないため、翌日当科を再度受診した。

現 症 : 左陰嚢部は鶏卵大に腫大し、全体的に圧痛を認めた。超音波検査上、左精巣の血流低下は認められなかった。

入院時検査所見 : 軽度の炎症反応上昇 (WBC 8,440/μl, CRP 1.31 mg/dl) および性腺性精巣機能低下 (テストステロン 0.15 ng/ml [基準域 : 1.92~8.84], LH 48.3 mIU/ml [基準域 : 2.2~8.4], FSH

79.6 mIU/ml [基準域: 1.8~12], PRL 31.9 ng/ml [基準域: 4.3~13.7] を認めた. 腫瘍マーカーの上昇は認めなかった (AFP < 2.0 ng/ml, total HCG < 0.1 mIU/ml). 尿所見は異常を認めなかった.

画像検査: CT では左陰嚢の腫大を認め, 精巣は軽度高吸収値を示した. 造影効果はわずかであった. MRI では腫大した左陰嚢内に萎縮した精巣を認めた. 精巣は T2, T2*WI で低信号を示し, T1WI で高信号を認めず, 造影効果の低下を認めた. 精巣上体も T2, T2*WI で低信号を示し斑な造影効果を認めた (Fig. 1). これらより, 精巣は T1WI で高信号を呈さない陳旧性の血腫が疑われ, 精巣・精巣上体の造影効果の低下や血管炎の既往から精巣の虚血や梗塞が疑われた.

入院後経過: 左精巣梗塞と性腺性精巣機能低下の診断で, 保存的に経過観察したが疼痛は改善せず, 第7病日に疼痛除去の目的で精巣摘除術を施行した.

術中所見: 鼠径アプローチで手術を開始し, 精索を温存した精巣摘除術を予定していた. 精索や精巣の捻転は認めなかった. 肉眼的に精巣の剖面は出血壊死を

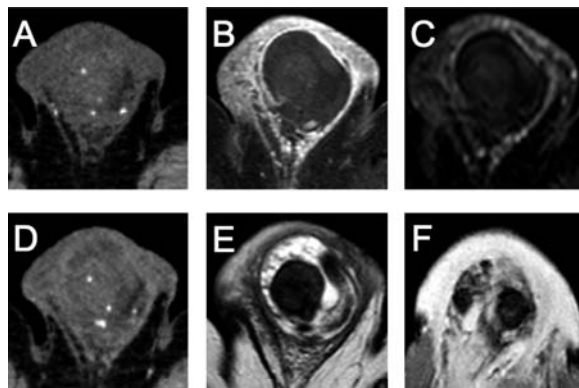


Fig. 1. CT and MRI of scrotum. A: Plain CT, B: T1-weighted MRI, C: Enhanced MRI, D: Enhanced CT, E: T2-weighted MRI, F: T2*-weighted MRI. These imaging studies show left testicular atrophy and necrosis.

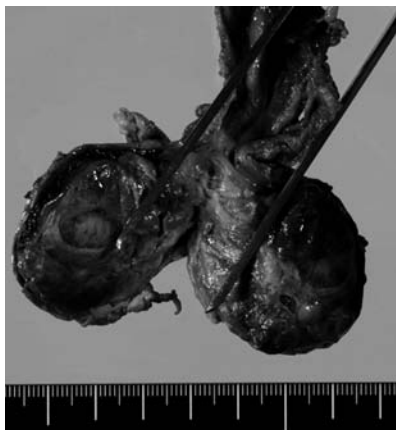


Fig. 2. The resected left testicular gross appearance shows hemorrhage and necrosis.

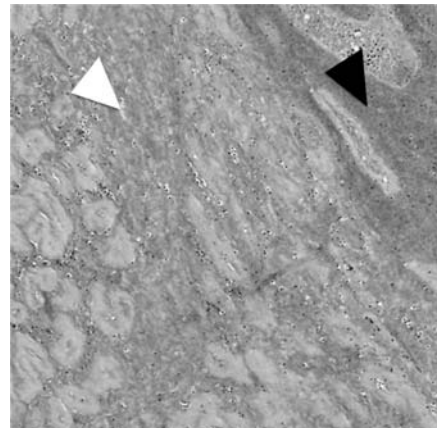


Fig. 3. Left testicular specimen reveals hemorrhage (black arrowhead) and necrosis (white arrowhead). Hematoxylin and eosin stain ($\times 100$).

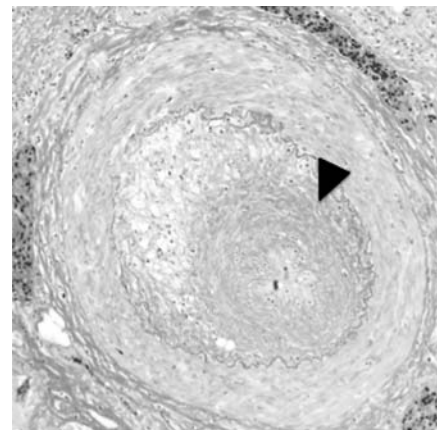


Fig. 4. Some left testicular vessels show stenosis and occlusion due to intimal thickening (black arrowhead). There was no acute vasculitis or fibrinoid necrosis. Elastica-masson stain ($\times 250$).

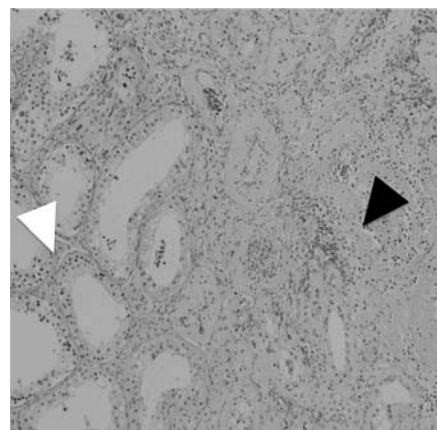


Fig. 5. Right testicular specimen reveals segmental infarction with coagulation necrosis (black arrowhead) and normal region (white arrowhead). Hematoxylin and eosin stain ($\times 100$).

呈しており内部は不明瞭で、壊死内の腫瘍の存在を否定できないため、高位精巣摘除術に切り替えた。

左精巣の病理所見：左精巣に大部分を占める壊死を認めた (Fig. 2, 3)。弾性線維染色では、活動性の血管炎の所見を認めなかった。血管内膜の肥厚により、内腔狭窄や閉塞を来している血管を認めた (Fig. 4)。悪性所見は認めなかった。

6年前の右側精巣梗塞の病理所見：右精巣に区域性の凝固壊死巣を認めた (Fig. 5)。弾性線維染色では血管壁に炎症細胞浸潤や線維化、硝子化が波及しており、弾性板の消失が散見され非特異的な血管炎の所見であった。フィブリノイド壊死は認めなかった (Fig. 6, Table 1)。

術後経過：手術翌日からテストステロンエナント酸

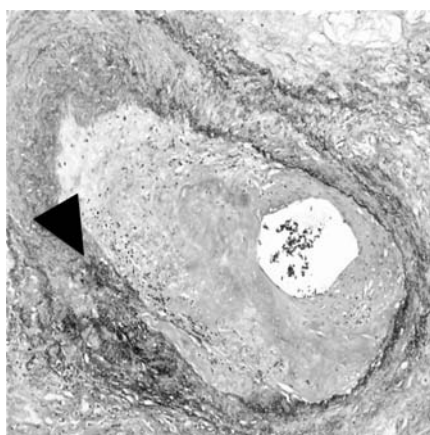


Fig. 6. Right testicular vessels show nonspecific vasculitis (black arrowhead). There was no fibrinoid necrosis. Elastica-masson stain ($\times 250$).

Table 1. 本症例における左右摘除精巣の比較

	右精巣	左精巣
被膜	特記所見なし	特記所見なし
血管炎	非特異的な血管炎	血管炎の所見なし
フィブリノイド壊死	なし	なし
血管の慢性変化	血管壁の硝子化・線維化	血管内膜の肥厚
精巣実質	区域性の凝固壊死	全体的な凝固壊死

エステル 250 mg 筋注を用い、4週ごとに補充を開始し、術後10日目に退院となった。

考 察

精巣梗塞は一般に精巣捻転や外傷などにより二次性に発症する。稀な原因として精巣上体炎や血管炎によるものが報告され、血管炎では特に結節性多発動脈炎 polyarteritis nodosa (PAN) に伴う報告がある¹⁾。

PAN は中・小動脈の壊死性血管炎を主体とする稀な疾患である。本邦での有病率は100万人あたり11.7人であり、難病に指定されている²⁾。本疾患は腎障害や皮膚の潰瘍形成、中枢神経症状など多彩な全身症状を呈することが知られている。本症例は、広範囲の下肢潰瘍に加え、再燃を繰り返す腎合併症の存在、精巣梗塞の既往から、1990年に提唱されたアメリカリウマチ学会 (ACR) の診断基準では PAN の診断となる³⁾。ただし、壊死性血管炎の所見を得られていないため、本邦の診断基準では疑い病名に留まる²⁾。

PAN と精巣病変の関連に関しては、前述した ACR の診断基準において10項目中の1項目に精巣痛・圧痛を認めることが挙げられている³⁾。また、PAN の剖検例 (n=38) において精巣病変の検討がなされているが、55%に精巣出血を伴い、86%に特徴的なフィブリノイド壊死性血管炎の所見を認めたとの報告がある。これら剖検例のうち生前臨床的に陰嚢症状を認めた例は18%であり、無症候性に精巣が障害されていることが多いとされる⁴⁾。また、生前に临床上、同時性・異時性を問わず両側性に精巣梗塞を来し精巣摘除に至った例は、検索上自験例を含めて6例⁵⁻⁹⁾のみであった。このうち、4例で PAN との関連が示唆され、2症例では精巣にも PAN に特徴的な壊死性血管炎の所見を認めていた (Table 2)。

本症例を振り返ると、全身の臨床症状や両側精巣梗塞の発生頻度から、今回の精巣梗塞が PAN に関連したものと考えて矛盾はしない。ただし、特徴的な壊死性血管炎の所見が両側の精巣に得られていない事も事実である。右側の精巣梗塞に関しては、PAN に特徴的な壊死性血管炎は急性炎症期にのみ得られる所見であり、他の全身症状は右側精巣梗塞の半年後に増悪し

Table 2. 両側精巣梗塞の報告症例

著者	年 [引用]	年齢	血管炎の有無	背景疾患	発生時期
原	1984 [5]	39歳	なし	特記事項なし	3カ月後
Eisner	1991 [6]	65歳	血栓血管炎	精巣上体炎	同時
Stroup	2007 [7]	28歳	PAN like	PAN	同時
Yuminaga	2010 [8]	53歳	PAN like	PAN	同時
Toepfer	2011 [9]	55歳	非特異的血管炎	PAN	3カ月後
自験例		42歳	非特異的血管炎	PAN 疑い	6年後

PAN：結節性多発動脈炎。

ている事から、精巣梗塞時点では急性期に至らなかったため壊死性血管炎像が得られなかったと推察している。また、今回の左側精巣梗塞の病理所見では、PANの治療後であるため、活動性の血管炎を認めず、治療後の変化として残った慢性的な血管変化から虚血・梗塞に至ったと推察している。

一側性精巣梗塞後の、対側精巣梗塞のリスクに関しては、全身症状を伴わない精巣の出血・壊死・血管障害を来した20例をretrospectiveに追跡した(中央値:38カ月)報告があるが、全身性の血管炎や対側精巣の障害を来した症例はなかったとしている¹⁰⁾。しかしながら、本症例やPANに伴う精巣梗塞症例の報告から、全身症状の合併や梗塞の原因として血管炎、特にPANが疑われる精巣梗塞症例では、対側精巣梗塞による精子形成障害のリスクも考慮し、挙児希望があれば精子凍結などの提示も含めた定期的な経過観察の必要性があると考えられた。

結 語

精巣梗塞から6年を経て対側の特発性精巣梗塞を来し、両側精巣摘除に至った1例を経験した。陰囊痛症例において、血管炎、特にPANを有する症例では精巣梗塞も鑑別の1つとして考慮すべきである。また、精巣梗塞を診た場合、血管炎の所見やPANに特徴的とされる中・小動脈の壊死性血管炎と全身症状の有無を確認する必要がある。

文 献

1) Brimo F, Lachapelle J and Epstein JI: Testicular vasculitis: a series of 19 cases. *Urology* **77**: 1043-

1048, 2011
 2) Guideline for management of vasculitis syndrome (JCS 2008): Japanese Circulation Society. *Circ J* **75**: 474-503, 2011
 3) Lightfoot RW Jr, Michel BA, Bloch DA, et al.: The American College of Rheumatology 1990 criteria for the classification of polyarteritis nodosa. *Arthritis Rheum* **33**: 1088-1093, 1990
 4) Dahl EV, Baggenstoss AH and Deweerd JH: Testicular lesions of periarteritis nodosa, with special reference to diagnosis. *Am J Med* **28**: 222-228, 1960
 5) Hara S, Izumi T, Ohmae H, et al.: A case of bilateral testicular infarction without spermatic torsion. *Hinyokika Kyo* **30**: 947-952, 1984
 6) Eisner DJ, Goldman SM, Petronis J, et al.: Bilateral testicular infarction caused by epididymitis. *AJR Am J Roentgenol* **157**: 517-519, 1991
 7) Stroup SP, Herrera SR and Crain DS: Bilateral testicular infarction and orchiectomy as a complication of polyarteritis nodosa. *Rev Urol* **9**: 235-238, 2007
 8) Yuminaga Y, Richards B, Rasiah K, et al.: Polyarteritis nodosa presenting with bilateral testicular swelling and complicated by unilateral facial nerve palsy. *Korean J Urol* **52**: 364-367, 2011
 9) Toepfer NJ, Lountzis NI, Ugoeke JC, et al.: Polyarteritis nodosa with bilateral asynchronous testicular necrosis: a case report. *Case Rep Urol* 2011 : 465353, 2011
 10) Kao CS, Zhang C and Thomas MU: Testicular hemorrhage, necrosis, and vasculopathy likely manifestations of intermittent torsion that clinically mimic a neoplasm. *Am J Pathol* **38**: 34-44, 2014

(Received on May 13, 2016)

(Accepted on August 19, 2016)