# 陰茎に多発した神経鞘腫の1例

大城　碩輝[1]，清水　洋祐[1]，中保　良太[1]，山口　立樹[1]
請田　翔子[1,3]，宇都宮紀明[1]，浅井　沙月[2]，勝嶌　浩紀[2]
石原　美佐[2]，橋本　公夫[2]，金丸　聰淳[1]
[1]神戸市立西神戸医療センター泌尿器科，[2]神戸市立西神戸医療センター病理診断科
[3]市立大津市民病院泌尿器科

## A CASE OF MULTIPLE PENILE SCHWANNOMA

Hiroki Oshiro[1], Yousuke Shimizu[1], Ryota Nakayasu[1], Ritsuki Yamaguchi[1],
Shoko Uketa[1,3], Noriaki Utsunomiya[1], Satsuki Asai[2], Hiroki Katsushima[2],
Misa Ishihara[2], Kimio Hashimoto[2] and Sojun Kanamaru[1]
[1]*The Department of Urology, Kobe City Nishi-Kobe Medical Center*
[2]*The Department of Pathology, Kobe City Nishi-Kobe Medical Center*
[3]*The Department of Urology, Otsu Municipal Hospital*

A 48-year-old man presented with a painless nodule on the right ventral aspect of the penile shaft root. The patient visited the hospital and complained that the mass was growing. On physical examinations, a 5 cm mass without tenderness was palpated. An isoechoic mass about 4 cm in size was observed on ultrasonography. Inhomogeneous high signal intensity was observed on T2-weighted magnetic resonance imaging. A needle biopsy revealed schwannoma. During surgery for excision of the tumor, another small tumor was detected both tumors were resected. Both tumors were diagnosed as schwannoma by pathological examination. Out of 40 cases of penile schwannoma reported, eight were of multiple tumors. In our case, it was difficult to detect the other small tumor by preoperative diagnosis. Therefore, we recommend careful observation during surgery.

(Hinyokika Kiyo **68**：327-331, 2022 DOI：10.14989/ActaUrolJap_68_10_327)

**Key words**：Schwannoma, Penile neoplasm

## 緒　　言

神経鞘腫は末梢神経を構成する Schwann 細胞から発生する腫瘍である[1)]．体の様々な部位から発生する可能性があるが，陰茎から発生した神経鞘腫は非常に稀である．今回われわれは，無症候性に陰茎に発生した神経鞘腫の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：48歳，男性

主　訴：陰茎腫瘤の増大

現病歴：2010年頃より陰茎根部右腹側に無痛性腫瘤を自覚していたが，無症状のため放置していた．その後，次第に増大傾向にあったため2020年11月に当科を受診した．勃起障害や性交痛は認めず，性感染症または尿路感染症の既往もなかった．

初診時現症：陰茎根部右腹側に 5 cm 大の無痛性腫瘤を触知した（Fig. 1）．腫瘤は表面平滑であった．その他特記すべき身体所見は認めなかった．

血液検査：WBC 6,000/$\mu$l，Hb 17.6 g/dl，Plt 24.9 $\times 10^4/\mu$l，CRP 0.0 mg/dl，Cre 0.94 mg/dl

SCC 1.7 ng/ml（基準値＜1.5）

尿沈渣：赤血球 0〜1/HPF，白血球 0〜1/HPF

尿細胞診：陰性

超音波検査：陰茎根部右腹側に 22×28×38 mm 大の境界明瞭で等エコー像を呈する腫瘤像を認めた．

**Fig. 1**. On physical examination, a 5 cm mass without tenderness was palpated at the right ventral aspect of the penile shaft root.

**Fig. 2**. T2-weighted magnetic resonance imaging showed two tumors with inhomogeneous high signal intensity. The larger mass was about 20・26・41 mm (white arrow). The smaller mass was about 5.3・3.5・9.6 mm, and it could not be detected preoperatively (white triangle).

MRI 検査：右陰茎海綿体腹側に 20×26×41 mm 大の T1 強調像で中間信号，T2 強調像で不均一な高信号を呈する境界明瞭な腫瘤像を認めた（Fig. 2）．拡散強調像では高信号，ADC map で信号低下を呈する腫瘤像を認めた．

CT 検査：リンパ節腫大など明らかな転移を示唆する所見は認めなかった．

臨床経過：MRI の拡散強調像で高信号を示し，悪性所見を否定できなかったため，経皮的針生検を施行した．生検は尿道損傷を回避するため尿道に平行に穿刺し，穿刺部は圧迫止血した．生検組織では，紡錘形細胞が束状に増殖しており，免疫組織化学的には vimentin（＋），S100（＋），CD34（－），desmin（－），SMA（－），myogenin（－），AE 1/3（－）であり，神経鞘腫を疑う所見であった（Fig. 3A，B）．良性病変であったが腫瘍は増大傾向にあり，患者は外科的摘除を希望したため手術の方針とした．

術中所見：脊椎麻酔下仰臥位で，陰茎根部腹側の腫瘍直上から矢状方向に約 5 cm 皮膚切開し皮下組織を腫瘍周囲に沿って剥離した．尿道カテーテルを挿入し尿道を明瞭にした上で，腫瘍を脱転し，尿道海綿体と腫瘍の境界を剥離した（Fig. 4A）．境界部の癒着は強固であり尿道粘膜を一部損傷した．損傷部位の大きさは 5 mm 程度であった．損傷した尿道粘膜は 5-0PDS® にて連続縫合，尿道海綿体は 4-0PDS® にて結節縫合で修復した．術前の画像検査では確認できなかった小腫瘍を陰茎海綿体右側に認め，追加切除し標本として摘出した（Fig. 4B）．腫瘍の残存がないことを確認し手術を終了した．手術時間は 1 時間20分，出血量は少量であった．

摘出標本：20×30×45 mm 大と 5×3×12 mm 大の表面平滑黄白色調の腫瘍で，内部は黄色で点状出血や不明瞭な白色領域が認められた（Fig. 4C）．

病理組織学的所見：境界明瞭な結節性，一部分葉状の病変を認め，内部には紡錘形細胞の増殖が認められた．免疫組織学的には vimentin（＋），S100（＋），CD34（－），desmin（－），SMA（－）であり，神経鞘腫と診断した（Fig. 3C，D）．あきらかな悪性所見は認めなかった．

術後経過：術前に指摘できなかった小腫瘍については術中所見と照合し MRI を確認すると，右陰茎海綿体近傍に 5.3×3.5×9.6 mm 大の T2 強調像で不均一な高信号を呈する腫瘤を認めた（Fig. 2）．術後明らかな合併症を認めず，術後 2 日目に尿道カテーテルを留置のまま退院し，術後14日目に外来で尿道造影を行わずに尿道カテーテルを抜去した．術後 3 カ月目に膀胱鏡にて尿道の観察および尿道造影を施行したが尿道の損傷部に異常を認めなかった．術 6 カ月後の現在，肉眼的には明らかな再発を認めていない．

## 考察

神経鞘腫は末梢神経の Schwann 細胞より発生する腫瘍である．体の様々な部位に発生する可能性があり，特に頭部や四肢によく発生する[1]．泌尿器科領域では，精巣[2]，膀胱[3]，前立腺[4]，精嚢[5]での発生例が報告されている．陰茎に発生する神経鞘腫は稀であり[6]，1968年に Haines ら[7]が初めて陰茎に発生した神経鞘腫を報告した．2021年までに陰茎に発生した良性の神経鞘腫は世界において39例が報告されている[8~14]．今回は自験例を加えた計40例を Table にまとめ検討した．年齢は 1 ～74歳（中央値38.5歳）．おおむね無痛性で緩徐に増大するが，一部例では性交時痛や射精障害，陰茎の湾曲を呈する例も認めた．症状自覚から受診までの期間は 2 ～180カ月（中央値24カ月），腫瘍径は 5～100 mm（中央値 20 mm）であった．最も頻度の高い発生部位は背側であった（20例）．腫瘍数に関しては 2 割（ 8 例）の症例で多発であった．画像検査は超音波と MRI が施行されていることが多い．神経鞘腫に対する超音波検査では境界明瞭な低エコー像を示すが，一部不均一なエコー像を呈する例も存在する[15]．MRI では T1 強調像で低～中信号，T2 強調像で不均一な高信号を呈する[8]．CT は転移などの悪性所見の評価目的に施行するべきとされている[8]．針生検は自験例を含め 2 例で施行されていた．神経鞘腫に対しては，外科的摘出が第一の治療法であり，腫瘍の完全摘出が必須とされ，悪性が疑われる場

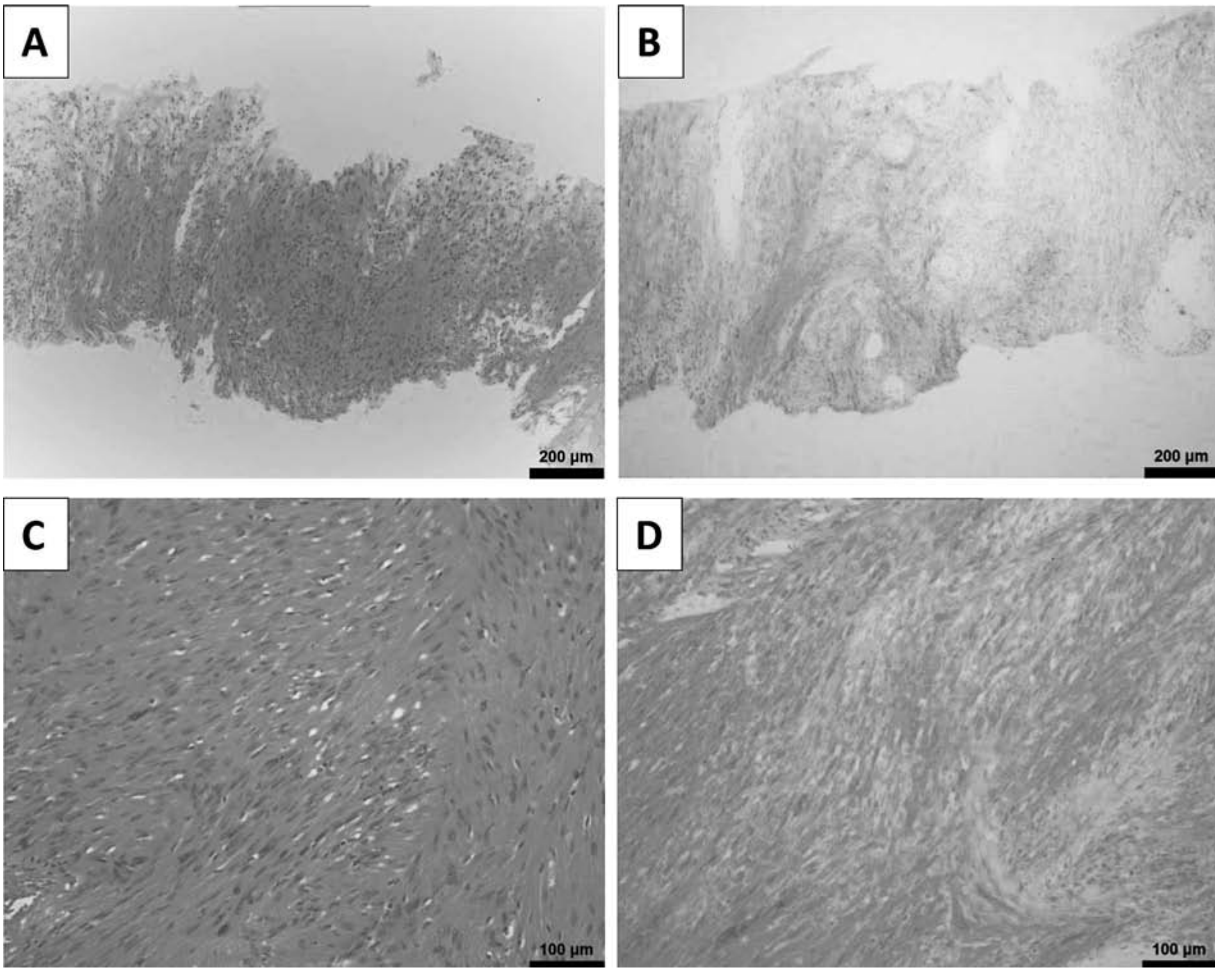


**Fig. 3**. Histological findings: hematoxylin and eosin (H-E) staining of biopsy tissue showed a biphasic pattern composed of Antoni A and B areas (A). Immunohistochemical staining of biopsy tissue showed strong expression of S-100 (B). H-E staining and immunohistochemical staining of S-100 in surgical tissue gave similar finding (C, D).

合には拡大切除も考慮すべきとされている[1]．病理組織学的所見では主に紡錘形の細胞で構成される Antoni A と Antoni B パターンを示し，免疫組織染色所見においては S100 がほぼ全例で陽性であり，この所見をもって神経鞘腫の確定診断に至る[16]．術後経過は一般的に良好なことが多く，再発例の報告は存在しなかった．周術期合併症についての報告は，射精障害の 1 例と自験例の尿道損傷のみであった．さて，自験例においては術前の画像検査ですべての腫瘍を同定することができなかった．上述のように 2 割の症例で多発例が存在し，その腫瘍径の中央値も 2 cm 程度と小さい傾向にあるため，術中の注意深い観察が重要であると考えられた．また，悪性の神経鞘腫では50％に遺伝性疾患である von Recklinghausens 病の併存が指摘されている[17]．Orchid ら[18]が報告した陰茎に発生した悪性の 7 例のうち 2 例と少数ではあるが von Recklinghausens 病の併存がみられた．このことより，陰茎に発生した神経鞘腫においても，悪性の鑑別においては家族歴の問診が重要と思われた．針生検に関しては，術前に生検を施行された例は 2 例と少なかった．しかし，Malhotra ら[10]は陰茎に発生した腫瘍に対する針生検は，神経鞘腫との鑑別の一助となると報告している．神経鞘腫の鑑別疾患としては，ペロニー病，脂肪腫，線維腫，平滑筋腫，稀ではあるが悪性肉腫などが存在する[17]．ほとんどが良性疾患であるため，針生検で診断をつけておくことで経過観察なども選択肢の 1 つとなる．また，自験例の術中所見として，腫瘍と尿道海綿体との癒着が強く，術中に尿道損傷をきたした．癒着が強い点を考慮すると悪性の印象が高まるが，術前の針生検で良性の神経鞘腫の判定を得ていたため，拡大切除の施行を回避することができた．

## 結　　語

陰茎に多発した神経鞘腫の 1 例を経験した．術前の画像検査ですべての腫瘍を同定することができなかった．神経鞘腫は多発する可能性があり，術中の注意深い観察が重要であると考えられた．

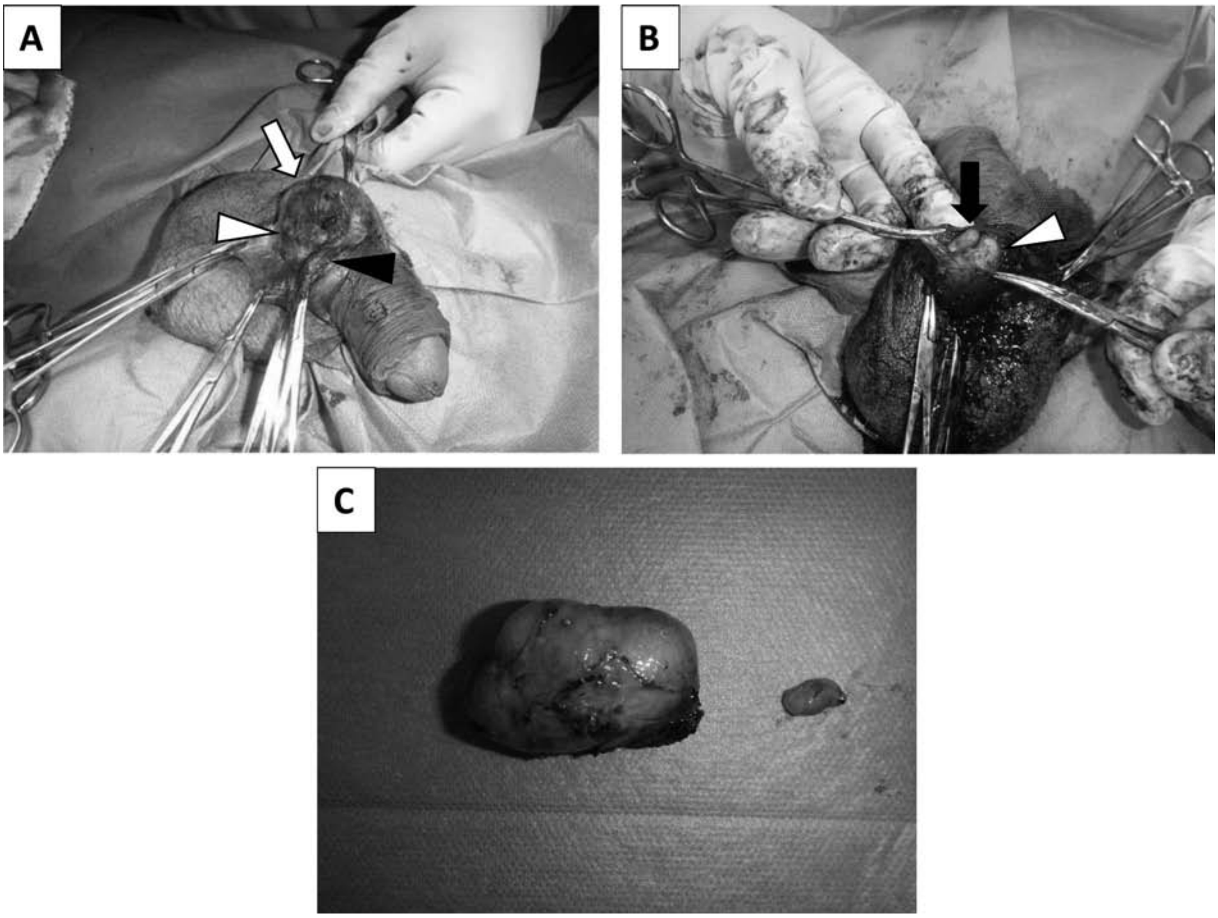


**Fig. 4**. The larger mass (white arrow) adhered strongly to the corpus cavernosum (white triangle) and corpus spongiosum (black triangle) (A). We could not detect the smaller mass (black arrow) preoperatively, but resected both (B). The larger mass was 45・30・20 mm and the smaller mass was 12・5・3 mm (C).

**Table**. Summary of 40 cases with schwannoma of the penis

| | |
|---|---|
| 症例 | 40例 |
| 年齢 | 1-74歳（中央値38.5歳） |
| 主訴 | 無痛性増大（29例），性交時痛（8例），陰茎弯曲（3例） |
| 受診までの期間 | 2-180カ月（中央値24カ月） |
| 大きさ | 5-100 mm（中央値 20 mm） |
| 部位 | 背側（20例），根部（11例），亀頭（3例），冠状溝（2例），腹側（1例），側面（1例），包皮（1例） |
| 個数 | 1個（32例），2個（2例），3個（1例），5個（1例），多数個（4例） |
| NF1 合併 | なし |
| 生検 | 針生検（2例） |
| 治療 | 外科的摘出（40例） |
| 合併症 | 尿道損傷（1例），射精障害（1例） |

## 文献

1) Nguyen AH, Smith ML, Maranda EL, et al.: Clinical features and treatment of penile schwannoma a systematic review. Clin Genitourin Cancer **14**: 198-202, 2016

2) Jiang R, Chen JH, Chen M, et al.: Male genital schwannoma, review of 5 cases. Asian J Androl **5**: 251-254, 2003

3) Bakurov EE, Krakhotkin DV and Kucherenko OB: Isolated primary schwannoma of the urinary bladder—a case presentation—. Urol Case Rep **18**: 29-30, 2018

4) Benjamin C, Hung S, Syuan S, et al.: Prostatic schwannoma presenting with prostate-specific antigen elevation: a case report. Yale J Biol Med **94**: 609-612, 2021

5) Zhang Y, Zhao J, Xu P, et al.: Multiple schwannoma of the seminal vesicle: a case report. Medicine (Baltimore) **99**: e21603, 2020

6) Suzuki Y, Ishigooka M, Tomaru M, et al.: Schwannoma of the penis: report of a case and review of the literature. Int Urol Nephrol **30**: 197-202, 1998

7) Haines CE and Garvey FK: Neurosarcoma of penis associated with multiple study of 46 cases. Cancer **25**: 1431-1447, 1970

8) Kim S, Ahn H, Kim K, et al.: Penile schwannoma mistaken for hemangioma: a rare case report and literature review. Transl Androl Urol **10**: 2512-2520, 2020

9） Chrysovalantis G, Vasileios K, Evangelos S, et al.: Plexiform schwannoma of the penis: a rare subtype of genital schwannoma. Case Rep Urol **3**: 1752314, 2019
10） Malhotra K, Shukla S, Gupta A, et al.: Penile neurilemmoma: utility of fine-needle aspiration cytology in diagnosis of a rare entity. J Cytol **31**: 176-178, 2014
11） Chiao L, Ching W, Yen C, et al.: Multiple penile schwannomas and their magnetic resonance imaging characteristics. J Androl **33**: 167-169, 2021
12） 井上貴昭，佐藤仁彦，森井栄一，ほか：陰茎に発生した神経鞘腫の 1 例．泌尿紀要 **54**：569-572, 2008
13） Jonah M, Edward L, Vikram D, et al.: Schwannoma of the penis: preservation of the neurovascular bundle. Urology **70**: 373, 2007
14） Andreas L, Tiemo K, Justus M, et al.: Solitary schwannoma of the glans penis. Urology **70**: 1007, 2007
15） Reynolds DL Jr, Jacobson JA, Inampudi P, et al.: Sonographic characteristics of peripheral nerve sheath tumors. AJR Am J Roentgenol **182**: 741-744, 2004
16） Skovronsky D and Oberholtzer J: Pathologic classification of peripheral nerve tumors. Neurosurg Clin N Am **15**: 157-166, 2004
17） Liang H, Hong W, Yuan C, et al.: Clinicopathological presentation and management of penile schwannoma. Sex Med Rev **8**: 615-621, 2020
18） Orchid D, Ngoc-Anh T, Lilibeth torno, et al.: Case of penile malignant peripheral nerve sheath tumor in a twenty-year-old male with neurofibromatosis type 1. Int Arch Urol Complic **4**: 044, 2018


(Received on March 2, 2022
Accepted on June 13, 2022)