

精巣上体サルコイドーシスの1例

佐々木 豪, 曾我倫久人, 三木 学, 舛井 覚
西川 晃平, 長谷川嘉弘, 山田 泰司, 木瀬 英明
有馬 公伸, 杉村 芳樹

三重大学大学院医学系研究科腎泌尿器外科学講座

EPIDIDYMAL SARCOIDOSIS : A CASE REPORT

Takeshi SASAKI, Norihito SOGA, Manabu MIKI, Satoru MASUI,
Kouhei NISHIKAWA, Yoshihiro HASEGAWA, Yasushi YAMADA, Hideaki KISE,
Kiminobu ARIMA and Yoshiki SUGIMURA

The Department of Nephrourologic Surgery and Andrology, Mie University Graduate School of Medicine

A 33-year-old male complained of poor vision and visited the ophthalmology department of our hospital. Right iridocyst suspected as a metastatic nodule, was found. A systemic examination was done. Abdominal computed tomographic (CT) scan showed an enhanced mass in the right scrotum, 15 mm in diameter and enlargement of iliac lymph nodes. Chest CT scan demonstrated bilateral enlargement of mediastinal lymph nodes and enlargement of lymph nodes above the collarbone. Since malignant lymphoma or testicular malignancy was suspected, right orchiectomy was planned. A hard and nodular mass at the head of the epididymis, completely separated from the testis, was recognized. Only open biopsy was done, because no malignancy was found by the intraoperative biopsy. Pathological findings of the epididymal tissue revealed non-caseating epithelioid cell granulomas. Sarcoidosis was diagnosed based on pathological findings and systemic evaluations. Steroid ocular instillation therapy was started. To the best of our knowledge, this is the 18th report of epididymis sarcoidosis in Japan.

(Hinyokika Kyo 55 : 645-649, 2009)

Key words : Sarcoidosis, Epididymis

緒 言

サルコイドーシスは多臓器に肉芽腫病変をきたす原因不明の全身性疾患である。陰嚢内に病変をきたすことは稀であり、今回精巣上体に発生したサルコイドーシスの1例を経験したので文献的考察とともに報告する。

症 例

患者：33歳，男性

主訴：視力低下，右無痛性陰嚢腫瘍

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：視力低下を主訴に，当院眼科を受診した。右虹彩腫瘍を認め，転移性腫瘍の可能性も否定できず，精査加療目的に入院となった。

入院時現症：身長 172 cm，体重 52 kg。右精巣頭部に弾性硬の腫瘍を触知し，圧痛は存在しなかった。

入院時検査所見：末梢血で白血球 8,150/ μ l，好中球 80.0%以外に異常所見は存在しなかった。生化学検査では総蛋白 8.6 g/dl， γ グロブリン 21.7%と上昇を確認した。腫瘍マーカーにおいては，IL-2 Receptor 軽度



Fig. 1. Chest CT scan showed bilateral enlargement of mediastinal lymph nodes.

高値 896 U/ml，HCG β 正常 <0.1 ng/ml，AFP 正常 2 ng/ml であり，胚細胞腫瘍などの存在は否定的であった。

胸部単純レントゲン所見：両側肺門部リンパ節腫大 (Bilateral hilar lymphadenopathy : BHL) が存在した。

胸部，腹部，骨盤部 CT 所見：右腸骨動脈分岐部，両側鎖骨上，縦隔，両側肺門リンパ節に腫大が確認された (Fig. 1)。また，右陰嚢内に径 15 mm 大の濃染する腫瘍が存在した (Fig. 2)。



Fig. 2. Abdominal CT scan showed an enhanced right intrascrotal mass 15mm in diameter.



Fig. 3. Ultrasonograph demonstrated the right hypoechoic epididymis mass, 15 mm in diameter.



Fig. 4. A hard and nodular mass at the head of the epididymis existed, which was clearly separated from the testis.

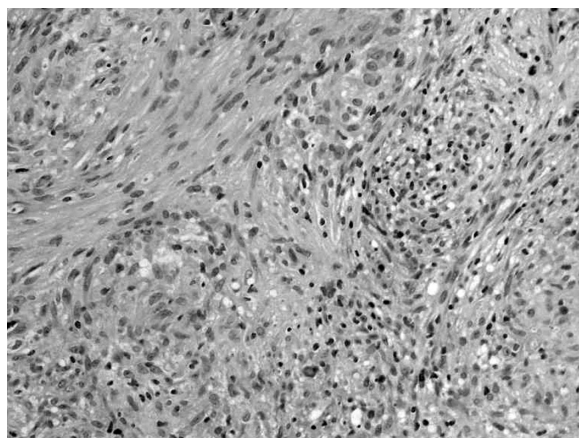


Fig. 5. Pathological findings of epididymal tissue identified non-caseating epithelioid cell granulomas (hematoxylin and eosin stain, reduced from $\times 100$).

腹部超音波所見：右精巣頭部に 15×15 mm 大の Hypoechoic lesion を認めた (Fig. 3).

PETCT 所見：両側鎖骨上，縦隔，両側肺門，腹部大動脈周囲リンパ節腫大を認め，また右陰嚢内に結節状の集積を認めた。

頭部 MRI 所見：右中心後回，透明中隔に造影効果を示す病変を認めた。

以上より，術前診断は，悪性リンパ腫または精巣腫瘍に伴う全身リンパ節転移と考え，右精巣高位摘出術を予定した。

術中所見：悪性腫瘍の可能性を考慮し，精索にて血流を遮断した後，腫瘤を観察した。腫瘤は精巣上体に局限し，弾性硬，結節性で精巣との境界は明瞭であった (Fig. 4)。急遽精巣鞘膜を解放し，腫瘤の術中迅速生検組織の病理学的評価を行った。悪性所見は確認されず，生検のみとし手術を終了した。

摘出標本の病理組織学所見：非乾酪性類上皮性肉芽腫の形成と線維増生を認め，肉芽腫性精巣上体炎と診断された (Fig. 5)。

術後経過：縦隔リンパ節生検と経気管支鏡肺生検が

施行され，病理学的に同様の結果であった。特発性全身リンパ節腫大を伴う臨床病態であり，また病理組織学的所見の肉芽腫性病変であるとの結果を加味して，サルコイドーシスと診断した。術後ステロイド点眼のみにて経過観察中であり，術後4カ月の現在，患側精巣上体の大きさに変化は存在しない。

考 察

サルコイドーシスは多臓器に肉芽腫病変をきたす原因不明の全身性疾患であり，本邦の有病率は10万対1.7~0.3とされる¹⁾。診断基準は2通りに分かれ，病

Table 1. Review of scrotal sarcoidosis: Collective review of 25 cases

発生部位	症例数 (%)
精巣上体	15例 (60.0%)
精巣上体+精巣	2例 (8.0%)
精巣上体+精巣+精索	1例 (4.0%)
精巣	6例 (24.0%)
非精巣，非精巣上体	1例 (4.0%)

Table 2. Characteristics of 18 cases of epididymal sarcoidosis

報告者	報告年	年齢	患側	部位	痛み	大きさ	他の症状	BHL	ACE	ツ反	処置	処置を必要とした理由	病理組織診断部位	治療
高木ら ⁸⁾	1986	29	右	精巣上体	記載なし	記載なし	鼻閉, 皮下腫瘍	有り	↑	陰性	精巣上体摘出	精巣腫瘍疑い	精巣上体, 鼠径リンパ節, 肺	ステロイド投与
森, 片岡ら ⁹⁾	1988	52	左	精巣上体	無痛性	鶯卵大	皮下結節	有り	↑	陽性	精巣上体摘出	慢性精巣上体炎疑い	精巣上体, 肺, 皮膚	ステロイド投与
大道ら ¹⁰⁾	1990	53	両	精巣上体	無痛性	右 20 mm, 左 15 mm	無症状	有り	↑	陽性	精巣上体摘出	記載なし	精巣上体, 肺	記載なし
大道ら ¹¹⁾	1991	54	右	精巣上体, 精巣	記載なし	記載なし	顔面の発赤	なし	正常	記載なし	精巣上体, 精巣摘出	記載なし	皮膚, 精巣上体, 精巣, 精索, 肺	記載なし
松川ら ¹²⁾	1992	36	右	精巣上体	有痛性	記載なし	無症状	有り	記載なし	記載なし	精巣上体摘出	悪性腫瘍または精巣上体炎の疑い	肺, 精巣上体	経過観察
Yamamoto ら ¹³⁾	1992	59	両	精巣上体	無痛性	20 mm 大	無症状	有り	↑	陰性	生検	腫瘍の増大	精巣上体	経過観察
富樫ら ¹⁴⁾	1993	13	右	精巣上体	無痛性	7 mm 大	無症状	有り	↑	陽性	精巣上体部分切除	精巣腫瘍疑い	肺, 精巣上体	ステロイド投与
Suzuki ら ¹⁵⁾	1994	43	左	精巣上体	無痛性	20 mm 大	無症状	有り	正常	記載なし	精巣上体摘出	悪性否定のため	精巣上体	記載なし
柴田ら ¹⁶⁾	1997	52	左	精巣上体	無痛性	大豆大	ぶどう膜炎	有り	正常	陰性	精巣上体摘出	悪性否定のため	精巣上体	経過観察
藤田ら ¹⁷⁾	1998	23	両	精巣上体, 精巣	無痛性	記載なし	ぶどう膜炎	有り	↑	記載なし	生検	記載なし	肺, 精巣	記載なし
鈴木ら ¹⁸⁾	2000	58	右	精巣上体	無痛性	20 mm 大	ぶどう膜炎	有り	↑	記載なし	精巣上体摘出	精巣サルコイドーシス疑い	精巣上体	経過観察
多武保ら ¹⁹⁾	2003	27	左	精巣上体	無痛性	20×16×14 mm 大	皮膚サルコイドーシス	有り	↑	記載なし	精巣上体部分切除	悪性否定のため	皮膚, 精巣上体	経過観察
Handa ら ²⁰⁾	2003	25	両	精巣上体, 精巣	有痛性	記載なし	ぶどう膜炎, 発熱, 食欲低下, 頭痛, 腹痛	有り	↑	陰性	処置なし	診断済みのため	肺, リンパ節	ステロイド投与
児玉ら ⁷⁾	2004	46	両	精巣上体	無痛性	大豆大	皮下結節	なし	正常	陰性	両側精巣上体摘出	慢性精巣上体炎疑い	精巣上体, 皮下結節	経過観察
小出ら ²¹⁾	2004	28	両	精巣上体	無痛性	左 20 mm, 大 2 個, 右 10 mm, 大 1 個	皮膚腫瘍, 無精子症	有り	↑	記載なし	生検	精巣上体, サルコイドーシス疑い	皮膚, 肺, 精巣上体	ステロイド投与
Obinata ら ²²⁾	2007	31	左	精巣上体, 小結節 4 個	無痛性	15×20 mm 大	無症状	有り	↑	記載なし	精巣上体摘出	診断目的	精巣上体	経過観察
堀江ら ²³⁾	2008	75	両	精巣上体	記載なし	記載なし	左網膜血管炎, 乳頭炎	有り	記載なし	記載なし	精巣上体摘出	記載なし	精巣上体, 肺	ステロイド投与
自験例	2008	33	右	精巣上体	無痛性	大豆大	転移性虹彩腫瘍疑い	有り	正常	陽性	開放生検	悪性腫瘍疑い	精巣上体	ステロイド投与

理検査にて非乾酪性類上皮細胞性肉芽腫がある場合は、臨床症状と検査所見から診断確定となり、病理検査にて非乾酪性類上皮細胞性肉芽腫がない場合には、臨床症状とツベルクリン反応陰性と Angiotensin converting enzyme (ACE) 上昇の組み合わせから診断確定となる。診断に用いられる画像診断はガリウムシンチが有用とされ、最近 PETCT も有用と報告されている²⁾。治療は、肺門および縦隔リンパ節病変のみの症例ではステロイド治療の対象とはならないとされる。眼病変はステロイド点眼にて治療を開始し、治療抵抗性であればステロイド全身投与を併用するとされる。また、心病変、中枢神経病変、進行性難治例および自覚症状の強い場合にはステロイドの全身投与が必要となる。

陰嚢内に発生するサルコイドーシスは稀であり全体の約0.2%とされ、剖検例では約5%とされる^{3,4)}。男性性腺へのサルコイドーシスの報告は1919年に Van Husen⁵⁾ によって最初になされ、本邦では Maeda ら⁶⁾ により剖検例での精巣サルコイドーシスが最初に報告された。Kodama ら⁷⁾ は、海外を含めた男性性腺へのサルコイドーシス患者60症例をまとめ、黒人(58%)に多く、アジア人(15%)、白人(8%)では少ないと報告した。われわれの調べうる限り、本邦での陰嚢内に発生するサルコイドーシスは25例の報告があり、精巣上体サルコイドーシスは高木ら⁸⁾ が本邦で初めて報告し、今まで自験例を含む18例⁷⁻²³⁾ が報告された。

今回われわれは、本邦の精巣上体サルコイドーシス18例について集計を行った(Table 2)。平均年齢は40.9歳(13~75歳)、無痛性が86%と多く、大きさは小豆大程度で、患側に左右差は認めなかった。自覚症状として、眼症状、皮膚症状がそれぞれ1/3の症例に存在し、その他(無精子症、発熱、倦怠感)の報告があった。検査所見は、BHLを88%で認め、ACE上昇を68%で認め、ツベルクリン反応は55%で陰性であった。エコー所見は、低エコー域の腫瘤として観察されることが多いが、高エコー域やモザイク状である症例もみられた。本症例において腫瘤は低エコー域として同定された。その他の画像所見としてガリウムシンチで精巣上体に集積のみられた報告はあるが、本症例のようにPETCTで精巣上体に集積がみられたとする報告は、初めてである。88%の患者で診断のために、精巣上体への外科的処置(精巣上体摘出、精巣上体部分切除、生検)が行われていた。さらに、既往歴にサルコイドーシスがある患者に限っても、94%の患者で悪性腫瘍が否定できず外科的処置を受けていた。治療はステロイド投与が7人で経過観察が8人であった。

精巣上体サルコイドーシスの鑑別疾患として、悪性腫瘍、結核、真菌、炎症性疾患などがあり、特に悪性

腫瘍との鑑別目的が重要である。精巣上体腫瘍は陰嚢内腫瘍の約5%であり²⁴⁾、75%が良性で、25%が悪性とされるが²⁵⁾、エコーやMRIなどの画像検査では良性か悪性かの区別がつかないとされる²⁰⁾。本症例でも、年齢、画像所見からも精巣腫瘍が否定できないため、右高位精巣摘出術を予定した。しかし、病変が精巣上体に局限しており、また術中迅速病理検査にて、悪性所見を認めなかったことから生検のみとした。両側性の精巣腫大で腫瘍マーカーが陰性で精巣腫瘍が否定的であり、かつサルコイドーシスが疑われる場合には、妊孕性を喪失しないように生検にとどめるのが良いとされている²⁶⁾。しかし、サルコイドーシス患者に精巣腫瘍が合併した症例²⁷⁾も報告されており注意が必要である。

本症例は精巣上体と縦隔、肺の病理所見において特発性肉芽腫が証明された。しかし、前述した診断基準に示すサルコイドーシスの特徴的所見であるACEが正常範囲であり、またツベルクリン反応が陽性であったため、確定診断が困難な状態であった。病理組織学所見と特発性の全身性リンパ節腫大が存在した臨床所見を加味し、サルコイドーシスの診断に至った。虹彩腫瘍と頭部病変は、サルコイドーシスの全身症状として発症したものと考えられた。

現在、ステロイド投与のみで症状は安定しているが、今後は症状の増悪に注意深い経過観察が必要であると考えられた。

結 語

陰嚢内腫瘤を初発とし、サルコイドーシスと診断した1例を経験した。全身症状を伴う精巣上体腫瘤ではサルコイドーシスを考慮する必要があると考えられた。

文 献

- 1) 津田富康, 石原麻美, 岡本祐之, ほか: サルコイドーシスの診断基準と診断の手引き2006. 日本サルコイドーシス会誌 **27**: 89-102, 2007
- 2) Braun JJ, Kessler R, Constantinesco A, et al.: ¹⁸F-FDG PET/CT in sarcoidosis management: review and report of 20 cases. *Eur J Nucl Med Mol Imaging* **35**:1537-1543, 2008
- 3) Turk CO, Schacht M and Ross L: Diagnosis and management of testicular sarcoidosis. *J Urol* **135**: 380-381, 1986
- 4) Ricker W and Clark M: Sarcoidosis: a clinicopathologic review of 300 cases including 22 autopsies. *Am J Clin Pathol* **19**: 725-749, 1949
- 5) Van Husen J: Ein Beitrag zur Kenntnis des Boeckschen miliarlupoids und seiner Beziehung zu Erkrankungen anderer Organe. *Dermat Ztschr* **28**: 1, 1919
- 6) Maeda S, Murao S, Sugiyama T, et al.: Generalized

- sarcoidosis with sarcoid aortitis. *Acta Pathol Jpn* **33**: 183-188, 1983
- 7) Kodama K, Hasegawa T, Egawa M, et al.: Bilateral epididymal sarcoidosis presenting without radiographic evidence of intrathoracic lesion. *Int J Urol* **11**: 345-348, 2004
 - 8) 高木英志, 伊藤健吾, 大井 薫, ほか: 鼻粘膜, 副睾丸に病変を呈したサルコイドーシスの1例. *日胸疾患会誌* **24**: 83-86, 1986
 - 9) 片岡幹男, 中田安成, 江尻東伍, ほか: 陰嚢サルコイドーシスの1例. *日胸疾患会誌* **26**: 1201-1206, 1988
 - 10) 大道光秀, 平賀洋明, 田垣 茂, ほか: 両側副睾丸にも病変を認めたサルコイドーシスの1例. *交通医* **44**: 263, 1990
 - 11) 大道光秀, 平賀洋明, 田垣 茂, ほか: 副睾丸にも病変を認めたサルコイドーシスの2例. *日本サルコイドーシス学会誌* **10**: 132-133, 1991
 - 12) 松川秀樹, 山城清司, 松尾重樹, ほか: 精巣上体サルコイドーシスの1例. *泌尿器外科* **5**: 1237-1238, 1992
 - 13) Yamamoto N, Hasegawa Y, Miyamoto K, et al.: Bilateral epididymal sarcoidosis. *Scand J Urol Nephrol* **26**: 301-303, 1992
 - 14) 富樫正樹, 渡井至彦, 出村孝義, ほか: 精巣上体サルコイドーシスの1例. *日泌尿会誌* **84**: 1887-1890, 1993
 - 15) Suzuki Y, Koike H, Tamura G, et al.: Ultrasonographic findings of epididymal sarcoidosis. *Urol Int* **52**: 228-230, 1994
 - 16) 柴田康博, 川島清隆, 高橋溥朋: 精巣上体サルコイドーシスの1例. *泌尿紀要* **43**: 687-689, 1997
 - 17) 藤田晃史, 藤栄寿雄, 田村和哉, ほか: 精巣および精巣上体に病変を認めたサルコイドーシスのMRI. *日本医放会誌* **58**: 764-765, 1998
 - 18) 鈴木光一, 岡崎 浩, 鈴木孝憲, ほか: 精巣上体サルコイドーシスの1例. *北関東医* **50**: 324, 2000
 - 19) 多武保光宏, 加藤司顯, 村田明弘, ほか: 精巣上体に発生したサルコイドーシスの1例. *泌尿器外科* **16**: 233-236, 2003
 - 20) Handa T, Nagai S, Hamada K, et al.: Sarcoidosis with epididymal and testicular lesions. *Intern Med* **42**: 92-97, 2003
 - 21) 小出隆生, 古川洋二, 小林達也, ほか: 閉塞性無精子症を呈した両側精巣上体サルコイドーシスの1例. *西日泌尿* **66**: 148, 2004
 - 22) Obinata D, Yamaguchi K, Hirano D, et al.: Intrascrotal involvement of sarcoidosis presenting like testicular appendices. *Int J Urol* **14**: 87-88, 2007
 - 23) 堀江真史, 野口智史, 田宮浩之, ほか: 両側精巣上体腫瘍にて発見されたサルコイドーシスの1例. *日内会関東会* **556**: 27, 2008
 - 24) Elsasser E: Tumors of the epididymis. *Recent Results Cancer Res* **60**: 163-175, 1977
 - 25) Beccia DJ, Krane RJ and Olsson CA: Clinical management of non-testicular intrascrotal tumors. *J Urol* **116**: 476-479, 1976
 - 26) Reineks EZ and MacLennan GT: Sarcoidosis of the testis and epididymis. *J Urol* **179**: 1147, 2008
 - 27) Geller RA, Kuremsky DA, Copeland JS, et al.: Sarcoidosis and testicular neoplasm. *J Urol* **118**: 487-488, 1997

(Received on February 27, 2009)

(Accepted on May 14, 2009)