

精巣上体炎の治療中に全般性精巣梗塞を 認め精巣摘除に至った 1 例

藤原進太郎¹, 中原 康雄^{1,2}, 大倉 隆宏^{1,2}, 浮田 明見^{1,2}
花木祥二郎^{1,2}, 石橋 脩一^{1,2}, 高橋 雄介^{1,2}, 神農 陽子³

¹独立行政法人国立病院機構岡山医療センター小児外科

²NPO 法人中国四国小児外科医療支援機構

³独立行政法人国立病院機構岡山医療センター病理診断科

GLOBAL TESTICULAR INFARCTION DURING TREATMENT FOR EPIDIDYMITIS

Shintaro FUJIWARA¹, Yasuo NAKAHARA^{1,2}, Takahiro OHKURA^{1,2}, Asami UKIDA^{1,2},
Shojiro HANAKI^{1,2}, Syuichi ISHIBASHI^{1,2}, Yusuke TAKAHASHI^{1,2} and Yoko SHINNO³

¹The Department of Pediatric Surgery, National Hospital Organization Okayama Medical Center

²Chugoku-Shikoku Pediatric Surgical Partners Organization

³The Department of Clinical Pathology, National Hospital Organization Okayama Medical Center

We report a case of global testicular infarction associated with epididymitis. A 26-year-old man with a history of clean intermittent self-catheterization since he was 1 year old presented to our hospital with left scrotal pain and swelling. He was diagnosed with epididymitis and was prescribed levofloxacin. On the next day, he returned with worsened symptoms of left scrotal pain, swelling, and fever. He was admitted because of his severe symptoms and high C-reactive protein level in the blood test. Antimicrobial therapy with intravenous flomoxef and analgesic treatment with pentazocine and loxoprofen were started but the symptoms did not improve. The color-Doppler ultrasound repeated on the 1st, 4th, and 5th day of admission showed left epididymal hypervascularity but it did not indicate testicular hypovascularity in any examinations. On the 6th day of admission, a contrast-magnetic resonance imaging (MRI) scan revealed no contrast enhancement in the left testis and high orchiectomy was performed. On pathological examination, abscess of the entire epididymis and generalized necrosis of the testes were observed. Inflammatory cell infiltration and thrombus formation were observed in almost all veins of the testis and spermatic cord, and the diagnosis of global testicular infarction associated with epididymitis was made. Global testicular infarction has been reported as a rare complication of epididymitis and should be considered in the case of atypical course of epididymitis.

(Hinyokika Kyo 67 : 343-347, 2021 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_67_7_343)

Key words : Epididymitis, Testicular infarction

緒 言

精巣上体炎は日常診療でしばしば遭遇する疾患であり、一般に予後良好な経過を辿るが、稀な合併症として精巣梗塞を来すとの報告が散見される。精巣上体炎が精巣梗塞を引き起こす明らかな病態は不明であるとされているものの、精巣上体の炎症に起因する精巣の血流障害が一因と考えられている。今回、精巣上体炎の加療中に、精巣上体炎の炎症に伴う血流障害により全般性精巣梗塞を生じ、精巣壊死にまで至った 1 例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 26歳, 男性.
主 訴 : 左陰嚢痛.

既往歴 : 出生時、第 1 仙椎レベルでの脊髄髄膜瘤を認めた。日齢 1 に髄膜瘤閉鎖術を、生後 1 カ月時に水頭症に対して脳室-腹腔シャント造設術を施行した。現在は 1 日 4 ~ 5 回、清潔間欠導尿を行っている。

現病歴 : 来院前夜からの左陰嚢痛を主訴に当科外来を受診した。身体所見では、左陰嚢の著明な腫大と発赤、疼痛を認め、精巣エコーで左精巣上体の腫大と血流増加を認めた。ドップラーエコーで精巣内部の血流を確認し、左精巣上体炎と診断した。レボフロキサシン内服で外来経過観察としていたが、翌日、症状の増悪と発熱を認めたため当科外来を再診した。臨床症状が増悪しており、入院加療とした。

入院時現症 : 身長 162.4 cm, 体重 85.2 kg, BMI 32.3 kg/m². 体温 39.3°C, 血圧 124/93 mmHg, 脈拍 108回/min. 左陰嚢は著明に腫大し、発赤を伴ってい



Fig. 1. (a and b) A coronal contrast-enhanced magnetic resonance image of the testes shows no contrast enhancement in the left testis.

た。また、左精巣・精巣上部に自発痛・圧痛を認めた。入院時検査所見：血液検査上、WBC 19,300/ μ l, CRP 24.5 mg/dl といずれも高値であった。尿検査では、蛋白 2+ で、潜血・亜硝酸塩・白血球はいずれも陰性だった。なお、入院時に提出した尿培養は陰性だった。

入院後経過：フロモキシセフ 1g $\times$ 3 回/日の静注にて保存的加療を開始した。疼痛に対しては、ペンタゾシン静注およびロキソプロフェンナトリウム水和物内服で対応した。しかしながら、発熱および陰嚢腫大・発赤・疼痛には明らかな改善を認めなかった。入院 4 日目の精巣エコーでは、左精巣上部の腫大と血流増加の所見に著変なく、左精巣に関しても著明な腫大を認めたものの、内部エコー輝度に明らかな変化は認めなかった。入院 5 日目には、新たに左精巣周囲に液体貯

留を認め、抗菌薬の効果に乏しいと考え、メロペネムに変更した。症状の改善に乏しく、入院 6 日目に精巣造影 MRI を撮影した。

精巣 MRI 所見（入院 6 日目）：T2 強調画像では、左精巣内部はわずかに不均質な高信号を呈しており、精巣周囲には、一部液体貯留を疑う高信号域を認めた。造影 T1 強調画像では、左精巣全体の造影効果が完全に消失していた（Fig. 1a, b）。

手術所見および術後経過：MRI 所見より、左精巣梗塞および精巣壊死と診断し、試験切開術を施行した。左陰嚢を横切開し、左精索を直視下に確認したが、左精索捻転は認めなかった。精巣固有鞘膜を切開すると、鞘膜内には膿瘍が形成され、精巣上部は暗赤色に変色していた（Fig. 2a）。精巣白膜を切開したところ、精巣内容は全体が暗赤色に液状化しており

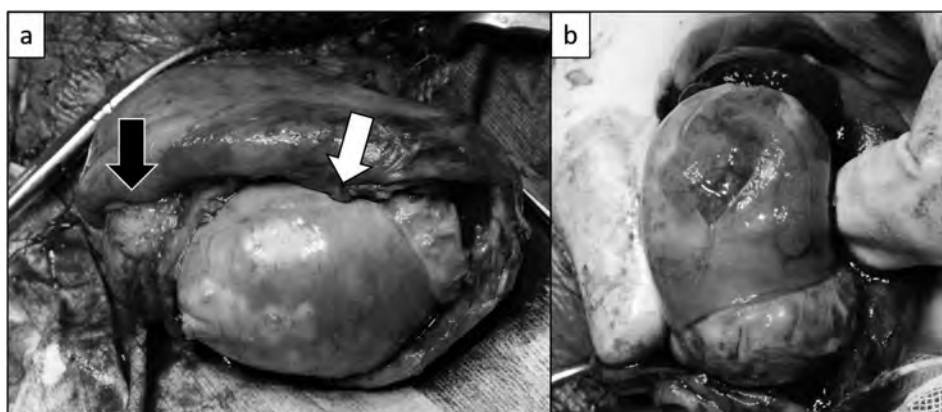


Fig. 2. (a) A dark reddish epididymis (black arrow) and white discolored testis (white arrow) is observed in the thickened tunica vaginalis. (b) The necrotic testis is filled with a dark red fluid.

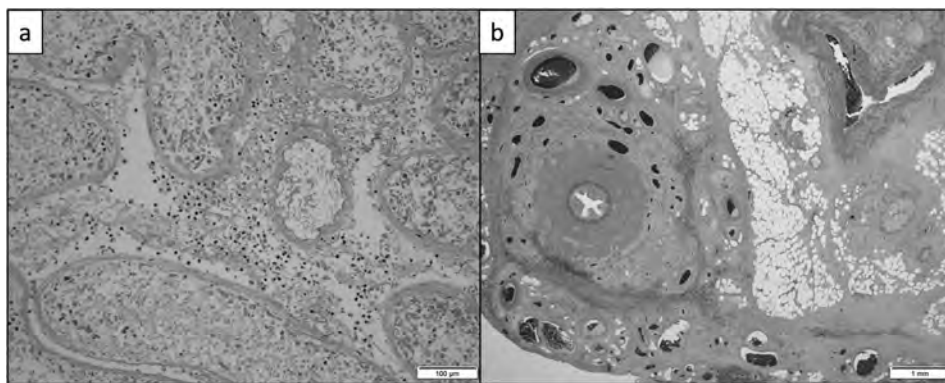


Fig. 3. (a) Microscopic findings reveal nuclear loss in all sperm cells, and the testis is generally necrotic (Hematoxylin and Eosin staining $\times 200$). (b) Most of the testicular veins have thrombi formation and inflammatory cell infiltration, though the inflammatory cell infiltration is mild and no thrombi are seen in the arteries (Elastica-Masson staining $\times 20$).

(Fig. 2b), 温存は困難と判断した。左精索を結紮・切離し、左精巣摘除術を完了した。術後経過は良好で、臨床所見、血液検査は速やかに改善した。

病理所見：精巣上体は全域に好中球浸潤を認め、精巣上体膿瘍と診断した。精巣は全般性に壊死しており (Fig. 3a) 精巣上体付近の一部に好中球浸潤を認めたが、その他の部分については炎症細胞の浸潤は認めなかった。摘出標本内の動脈は、動脈壁の一部に炎症細胞浸潤を認めるも構造は保たれていた。一方静脈においては、観察範囲のほぼすべての静脈で血管壁における全層性の炎症細胞浸潤と、内腔の血栓形成を認めた (Fig. 3b)。

細菌検査所見：精巣固有鞘膜内の膿からは、細菌は検出されなかった。一方、精巣白膜内の精巣壊死物質から、*Klebsiella pneumoniae* が検出された。

考 察

今回われわれは、精巣上体炎の治療中に全般性精巣梗塞を生じた1例を経験した。精巣上体炎に伴う精巣梗塞は、これまでも精巣上体炎の稀な合併症として報告されてきた¹⁻⁴⁾。しかし、その多くは区域性梗塞であり、全般性梗塞を生じた報告は稀である。医学中央雑誌で「精巣梗塞」「精巣上体炎」をキーワードに検索した範囲では、邦文文献は区域性梗塞に関しての1例のみであり、全般性梗塞に関しては確認されなかった。また Pubmed を用いて、「testicular infarction」「epididymitis」をキーワードに検索したところ、英文での精巣上体炎に伴う全般性梗塞に関しての症例報告は14例であった。

精巣上体炎が全般性精巣梗塞を起こす明らかな機序は不明とされているが、Alharbi⁵⁾ らは、精巣上体・精巣に生じた炎症による組織の浮腫により精巣上体・精巣内部の静脈を圧迫し血流障害を来すことでうっ血と血栓形成を引き起こし、細胞障害を来すと報告

している。Gibran⁶⁾ らも同様に、炎症により腫大した精巣上体頭により精索内の精巣静脈が圧迫され血流障害を来すことで血管内皮障害を来し、精巣内のうっ血と血栓形成を来すと報告している。また、精巣上体炎の患者において、正常群と比較して精巣動脈の収縮期血流速度が増加することから、動脈性の血流障害の関与も示唆されている⁷⁾。以上の如く、精巣上体炎が全般性精巣梗塞を来す機序として、動脈性および静脈性の2つの因子による精巣血流障害が発生に関与していると推察されている。

本症例の病理所見から、今回、全般性精巣壊死を生じた病態について考察する。まず、動脈に炎症細胞浸潤は認めたものの完全な閉塞は来していなかったが、静脈は全域において炎症細胞浸潤と血栓形成による閉塞所見を認めた。精巣に関しては、精巣上体付近部の一部にのみ好中球浸潤を認め、加えて、左精巣全域の壊死を認めた。本症例の病理所見では、動脈は完全には閉塞しておらず、梗塞の主な要因としては炎症性浮腫による静脈うっ血により、精巣全域において血栓形成を起こしたことであると考えられた。以上より、本症例において全般性精巣虚血に至った病態は、精巣捻転症のように動脈の急激な閉塞を来したことによるものではなく、広範囲の炎症性静脈閉塞と精巣組織のうっ血により徐々に虚血に至ったことが主病態であると推察する。Chang⁸⁾ らは精巣上体炎に伴う全般性精巣梗塞6例を報告しており、病理学的所見として全例で広範な静脈閉塞を認めた一方で、6例中5例において動脈は開存していたと報告しており、本症例においても同様の所見であったと考えられる。

精巣上体炎に伴う全般性精巣梗塞の診断に関しては、カラードプラによる精巣エコー検査で精巣内の血流消失を確認することが有用とされている⁹⁻¹¹⁾。エコー検査には、繰り返し行える利点があるが、MRIは精巣エコーと比較して、血流障害をより鮮明に把握

することができる¹²⁾。一般的に精巣梗塞を起こした精巣は T2 強調画像で浮腫を反映した不均質な高信号を呈し、造影 T1 強調画像で精巣実質の信号低下と造影不良を認めると報告されている¹²⁾。本症例においても単純 T2 強調画像で患側の精巣実質はやや不均質な高信号域を呈していた。しかし、精巣実質内の信号強度に関しては健側精巣と比較すると患側と健側で大きな差は認めず、本症例においては単純 MRI 画像のみで血流障害の有無を診断することは困難であると考えられた。一方、造影 T1 強調画像においては、患側の精巣実質の信号低下と造影不良を認め、健側と比較することで明確に精巣梗塞の像を捉えることができおり、造影 MRI は精巣梗塞の診断に有用であると考えられた。

造影 MRI を用いた全般的精巣梗塞の早期診断の意義について、精巣機能温存の点に関してのこれまでの報告では、平均第14病日に診断できたものの、患側精巣は全例で“non-salvageable”であったとしている⁸⁾。一方、感染コントロールに関しては、診断が遅れた場合、全身性感染症へ進行する可能性が否定できない。本症例においても、摘出した精巣壊死物質内から、使用していた抗菌薬に感受性の *Klebsiella pneumoniae* の生菌が検出されており、壊死精巣の感染に関しては内科的治療のみでは不十分であったことが予想される。本症例において外科的治療介入にさらに時間を要した場合、菌血症などの全身性感染症へと進行した可能性が考えられる。いずれにしろこれまでの報告が少ないため、全般的精巣梗塞の造影 MRI による早期診断の意義については、今後の症例の蓄積が待たれる。

なお本症例においては、初回来院日、入院 1、4、5 日目に精巣エコーを行い、精巣上体の腫大と血流増加を認めること、また精巣内部のエコー輝度に明らかな変化がないことを確認していた。一方、精巣内部の血流に関しては入院日には確実に保たれていることを確認していたものの、入院 1 日目以降のエコーでは全般的精巣梗塞を想起していなかったため、精巣内部の微細な血流変化の評価が不十分であり、精巣周囲の増加した血流を精巣内血流と誤認していた可能性も否定できない。入院 6 日目に撮影した造影 MRI では全般的の造影不良所見が認められたことと併せて考えると、本症例において、入院期間中のどの時点から精巣全体の血流障害を来したかという点については推測の域を出ないものの、入院 5 日目までのエコー検査で精巣梗塞を検出しえなかった可能性と、入院 5～6 日目の間に精巣全体の血流障害に至った可能性の両者が考えられる。Amit¹²⁾ らは適切な抗菌薬を選択しているにもかかわらず臨床症状の改善が見られない場合は、精巣梗塞を考慮する必要があると述べており、本症例のように発症後数日の経過を経て全般的梗塞を来

たす場合もある。精巣上体炎に伴う精巣梗塞を早期に診断するため、治療開始後も精巣上体炎として安心することなく、定期的に精巣エコー検査で精巣内の血流の存在を確認し、臨床症状の改善が見られない場合には、時期を逸することなく造影 MRI を撮像すべきである。

結 語

精巣上体炎から波及したと考えられる全般的精巣梗塞の 1 例を経験した。全般的精巣梗塞は精巣上体炎の合併症として稀であるものの、深刻な合併症であり、適切な抗菌薬を選択しているにもかかわらず精巣上体炎治療中患者の症状改善に乏しい場合などは積極的に疑う必要がある。精巣上体炎に対する治療開始後にも、精巣上体炎として非典型的な経過を辿る場合には、精巣梗塞を鑑別に挙げ、時期を逸することなく造影 MRI を撮像して評価を行うことが肝要である。

文 献

- 1) 石川達郎, 泉 浩司, 近藤拓也, ほか: 精巣上体炎に続発した精巣区域梗塞の 1 例. 泌尿紀要 **63**: 387-390, 2017
- 2) Ong Lay Keat W, Lechmiannandan S, Manoharan D, et al.: Case report of bilateral testicular infarction due to severe bilateral epididymo-orchitis: a catastrophic complication causing castration. Int J Surg Case Rep **73**: 161-163, 2020
- 3) Lee W, Park H and Lee G: A case of testicular infarction from the complications of *Klebsiella oxytoca* induced acute epididymitis. J Infect Chemother **22**: 254-256, 2016
- 4) Eisner DJ, Goldman SM, Petronis J, et al.: Bilateral testicular infarction caused by epididymitis. Am J Roentgenol **157**: 517-519, 1991
- 5) Alharbi B, Rajih E, Adeoye A, et al.: Testicular ischemia secondary to epididymo-orchitis: a case report. Urol Case Reports **27**: 100893, 2019
- 6) Yusuf G, Sellars ME, Kooiman GG, et al.: Global testicular infarction in the presence of epididymitis. J Ultrasound Med **32**: 175-180, 2013
- 7) Aziz ZA, Satchithananda K, Khan M, et al.: High-frequency color Doppler ultrasonography of the spermatic cord arteries: resistive index variation in a cohort of 51 healthy men. J Ultrasound Med **24**: 905-909, 2005
- 8) Chang C Di, Lin JW, Lee CC, et al.: Acute epididymo-orchitis-related global testicular infarction: clinical and ultrasound findings with an emphasis on the juxta-epididymal string-of-bead sign. Ultrasound Q **32**: 283-289, 2016
- 9) Hsu PC, Huang WJ and Huang SF: Testicular infarction in a patient with spinal cord injury with epididymitis: a case report. J Rehabil Med **49**:

- 88-90, 2017
- 10) Farber NJ, Slater RC and Maranchie JK : Multidrug resistant epididymitis progressing to testicular infarct and orchiectomy. Case Rep Urol **7** : 1-3, 2013
- 11) Fernández-Pérez GC, Tardáguila FM, Velasco M, et al. : Radiologic findings of segmental testicular infarction. Am J Roentgenol **184** : 1587-1593, 2005
- 12) Ramjit A, Shin C and Hayim M : Complete testicular infarction secondary to epididymoorchitis and pyocele. Radiol Case Reports **15** : 420-423, 2020

(Received on January 28, 2021)
(Accepted on March 22, 2021)