

〔泌尿紀要22巻5号〕
1976年7月

辜丸周囲副腎遺残を伴った陰嚢内血管腫・リンパ管腫の1例

金沢大学医学部泌尿器科学教室（主任：黒田恭一教授）

江 尻 進

川 口 正 一

金沢大学医学部付属病院中央検査部（部長：松原藤継教授）

松 原 藤 継

HEMO-LYMPHANGIOMA OF SCROTAL SUBCUTANEOUS TISSUE WITH ADRENAL REST NEAR THE TESTIS: REPORT OF A CASE

Susumu EJIRI and Shoichi KAWAGUCHI

From the Department of Urology, School of Medicine, Kanazawa University

(Director : Prof. K. Kuroda)

Fujitsugu MATSUBARA

From the Central Clinical Laboratory, Kanazawa University Hospital

(Director : Prof. F. Matsubara)

A 5-year-old boy had a right orchiectomy for a progressively growing and painful testicular mass after traumatic episode on the right scrotal area. The right testicular mass was first noticed at the age of 3 years by his mother. The tumor resected surgically measured $3.0 \times 2.0 \times 2.0$ cm and 6.0 g in weight.

Microscopically the tumor was hemo-lymphangioma probably arisen in tunica vaginalis communis testis, and adrenal cortical tissue was also found near the mediastinum of the testis.

陰嚢血管腫あるいはリンパ管腫に、陰嚢皮膚からの発生と陰嚢皮下（陰嚢内）から発生するものが考えられるが、陰嚢内発生の方がより少なく、血管腫のみの報告¹⁻³⁾でもまれである。著者は右陰嚢皮下より発生したと考えられる血管腫・リンパ管腫の混合型および同側の辜丸周囲の副腎遺残を認めた症例を経験したので、本邦におけるいままでの陰嚢内血管腫・リンパ管腫混合型の報告例集計と合わせて報告する。

症 例

患 者：5歳，男児。

初 診：1975年2月21日。

主 訴 右陰嚢内腫瘍。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：3歳頃、母親が右陰嚢内に小指頭大の腫瘍のあるのに気づいた。腫瘍は紫色で比較的軟かく、近医を受診したがそのまま放置した。腫瘍はそこぞ増大することにはなかったが、1975年2月4日、幼稚園で陰嚢部をけられたあと増大し、疼痛を伴うようになった。翌日、某病院外科を受診し穿刺を受け、穿刺液が血性のため当科受診を勧められた。排尿障害、発熱などの自覚的な異常は認めていない。

現 症：体格中等大，栄養中等度。腹部，鼠径部には異常なし。陰茎は仮性包茎。左陰嚢内容は正常，右陰嚢内に雀卵大，硬，一部弾性軟で辜丸との境界不明な腫瘍を触知する。皮膚と一部癒着し，部分的に透光性陽性を示した。

入院時検査成績：血圧 110/60 mmHg，赤血球数 417×10^4 ，白血球数6500（白血球像正常），血色素 (Sa-

hli 法) 70%, 血小板数 15.8×10^4 , 出血時間, 凝固時間はともに正常. 赤沈 1 時間値 6 mm, 2 時間値 18 mm. 血清総蛋白 7.1 g/dl, 分画 (セルローズアセテート膜法) al. 66.7%, α_1 -gl. 3.0%, α_2 -gl. 12.1%, β -gl. 7.6%, γ -gl. 10.6%, A/G 比 2.00. LDH 283 U, al P-ase 6.1. 血清電解質, 尿素窒素, クレアチニンはいずれも正常. α -fetoprotein (—). 妊娠反応 (—). 尿中 17-KS 0.1 mg/dl, 尿中 17-OHCS 1.9 mg/dl, 尿中ゴナドトロピン 3 m.u.u./day. 尿所見は色調黄色, 清明, 蛋白 (—), 糖 (—), ウロビリノーゲン (正), 沈渣正常. 血清梅毒反応陰性. レ線学的検査は胸部および腹部単純撮影に異常なく, 排泄性腎盂撮影も正常.

手術所見: 以上の現症と諸検査成績, とくに局所所見より右嚢丸腫瘍を疑い, 1975年2月28日右高位除嚢術を施行した. 右陰嚢内容を露出すると, 下内側部に嚢丸と一部癒着し, 暗赤紫色と水腫様の混合した嚢胞状の腫瘍がみられた. 嚢丸は容易に摘除されたが, 腫瘍は穿刺部と思われる部位の皮膚および内側で陰茎根部から陰嚢中隔付近での癒着が高度で, 剝離に際し, 嚢胞の一部が破れ暗赤紫色や漿液性の内容物が流出した. 摘除標本は腫瘍が大きさ $3.0 \times 2.0 \times 2.0$ cm, 重さ 6 g の多房性嚢胞であり (Fig. 1), 嚢丸が大きさ $1.3 \times 0.8 \times 0.6$ cm でほぼ正常であった.

病理組織学的所見: 腫瘍は線維脂肪組織, 平滑筋組織中に嚢状の腔を多数集簇して認め, その内面は内皮細胞で覆われ, 壁がうすく一部に少量の平滑筋が混在し, うちに血液を入れたものがあり, 血管腫である (Fig. 2). 部位により嚢状血管周囲に著明な線維化と

軽度の小円形細胞浸潤をみる (Fig. 3). しかし平滑筋組織部に, 内面が内皮細胞で覆われ壁がきわめて薄く, 血液を入れない不正形腔が多数みられるリンパ管腫部もみられる (Fig. 4). 嚢丸は年齢に相当した未熟な状態で, 同縦隔部のすぐ周囲に小塊状の副腎皮質組織が認められた (Fig. 5).

術後経過: 軽度の血腫形成はあったがほぼ順調に経過し, 腫瘍の再発を認めていない.

考 察

陰嚢内血管腫・リンパ管腫の混合型および嚢丸周囲の副腎組織遺残について, 前者は発生部位と本邦における報告例をまとめ, 後者はその発生病理および腫瘍化について考察する.

まず陰嚢皮膚からの発生のを除き, 陰嚢内に発生した血管腫は1955年に Helland et al.¹⁾ の報告があり, 本邦では岩崎²⁾, 中神³⁾ の報告がみられる. しかし血管腫・リンパ管腫の混合型は1966年宮川⁴⁾ の報告が本邦のみならず, 欧米も含めて最初の報告とみられるが, それ以来著者の症例は本邦第4例目 (Table 1) に該当すると考えられる.

これらの症例をまとめてみると Table 1 のごとくになり, 主訴は陰嚢内腫瘍形成で全例に摘除手術がおこなわれている. その組織所見から発生部位が問題となるが, 宮川⁴⁾ は術中所見で腫瘍へのおもな血管の流入位置から発生部位を確認することを強調し, Helland et al.¹⁾ は血管腫単独例について組織中での平滑筋の有無に着目し, 皮下組織より発生したものである平滑筋が認められるとしている. 著者はさらに陰嚢

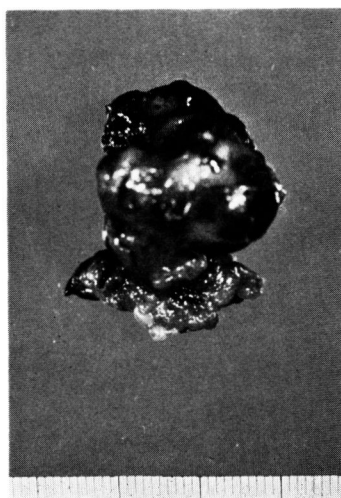
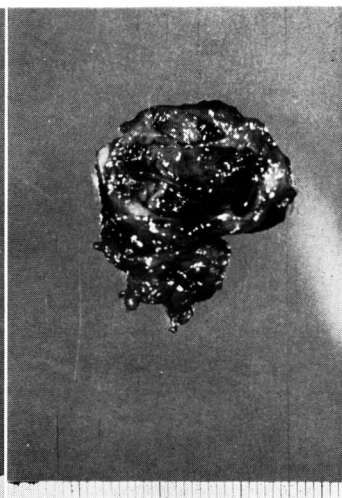


Fig. 1. 摘除標本
 $3.0 \times 2.0 \times 2.0$ cm, 6 g.



割 面
多房性嚢胞を示す.

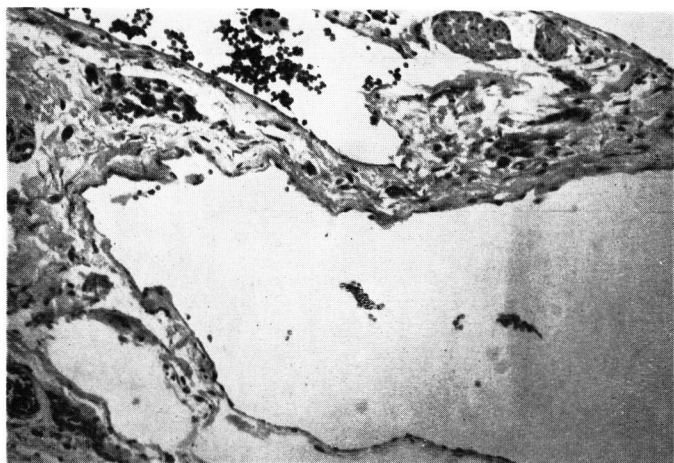


Fig. 2. 血管腫 (×100)



Fig. 3. 線維化と小円形細胞浸潤 (×100)

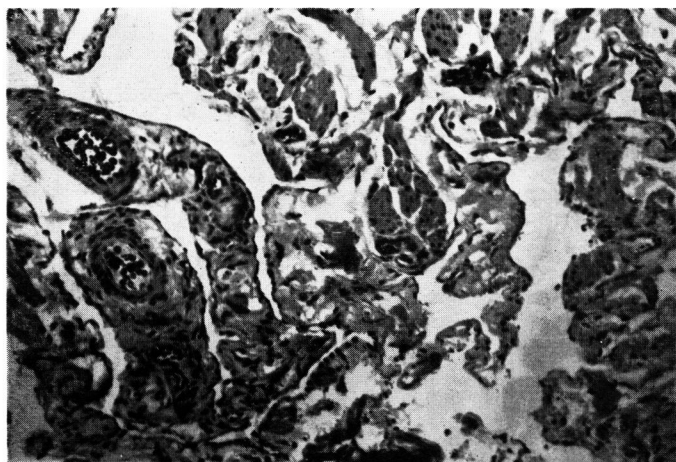


Fig. 4. リンパ管腫 (×100)

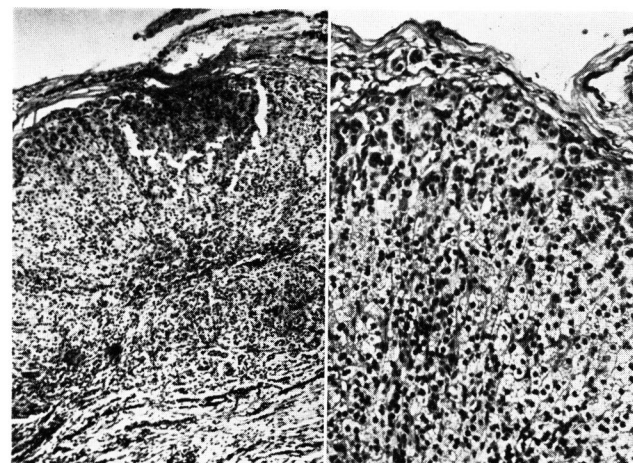


Fig. 5. 副腎皮質遺残 (×40) 強拡大 (×100)

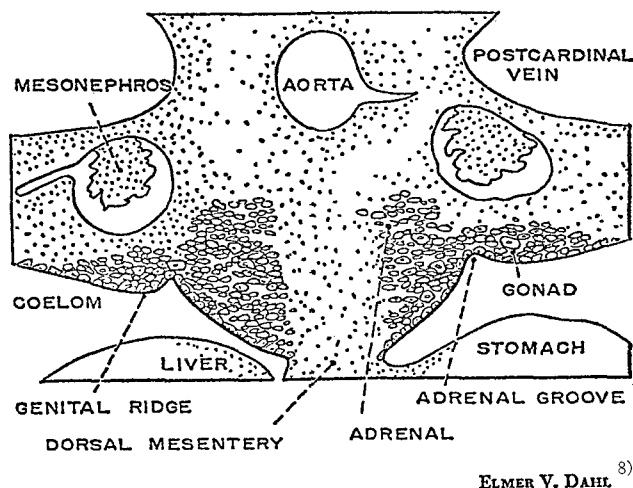
ELMER V. DAHL⁸⁾

Fig. 6. Diagram of a transverse section of a human embryo at about 5 weeks development, showing the proximity of the primitive gonad to the adrenal gland.

Table 1. 本邦の陰嚢皮下血管腫・リンパ管腫の混合型症例

症例	報告者	年 代	症例の年齢・主訴	腫瘍性状	治療	組 織
1	4) 宮川ら	1966	21才 右陰嚢内鈍痛性腫瘍	くるみ大 表面凹凸 弾性硬	摘除	血管腫・リンパ管腫混 合型 一部平滑筋線維(+)
2	5) 阿部ら	1970	18才 左陰嚢部腫瘍	くるみ大 表面凹凸 青色調	摘除	血管腫・リンパ管腫混 合型
3	6) 梶本ら	1972	2才 右陰嚢内腫瘍	くるみ大	摘除	海綿状血管腫とリンパ 管腫 一部慢性炎症(+)
4	自験例	1975	5才 右陰嚢内腫瘍	雀卵大	摘除	血管腫・リンパ管腫混 合型 嚢丸周囲副腎皮質遺残

の外層を構成する成分である横紋筋、表皮付属器などの有無にも着目してその部位を検討してみた。その結果組織所見のごとく脂肪組織と平滑筋のみで横紋筋、表皮付属器のいずれも認められず、術中に癒着の高度であった部位などを考え合わせると、陰嚢皮下で内挙嚢筋を含む総鞘膜付近より発生し精索近位に達する範囲のものと推定された。

嚢丸周囲の副腎皮質遺残については1885年 Dagonet⁷⁾ が精索中および嚢丸と副嚢丸の間に副腎皮質組織を証明して以来報告がみられる^{8,9,11)}。これらの報告では新生児剖検例を含め、7.3~14.8%の頻度で嚢丸周囲の遺残があるという⁸⁾。これらはいずれも精索・副嚢丸、嚢丸周囲にみられ嚢丸実質内にはみられてい

ない。本例では除嚢術の結果、偶然に発見され嚢丸縦隔周囲に認められた。発生学的には胎生4週目に中腎の腹側部に副腎皮質原基と生殖腺原基が接しており(Fig. 6)、胎生6週目には副腎皮質原基が副腎となるが、この際に生殖腺とともに下降し陰嚢内や卵巣周囲に定着し、内生殖器の付近や後腹膜組織に副腎遺残が形成される⁹⁾。遺残組織は生後2~3年で退縮し^{8,9)}、成人期にみられることはまれである¹²⁾。発生学的に髄質は外胚葉由来であるため遺残部に髄質組織を伴うことはない⁸⁾。遺残の副腎皮質組織からの腫瘍発生がじゅうぶんに懸念されており⁹⁾、陰嚢内遺残部の悪性腫瘍化から Cushing 症候群を示した報告もみられる^{10, 13)}。嚢丸部の遺残組織が腫瘍化した際、Leydig 細胞

腫瘍との鑑別で従来 Reinke 類結晶が Leydig 細胞腫瘍に特徴的とされてきたが、Reinke 類結晶のある場合にも副腎皮質 hormone 活性を示すものがあることから、その特異性が疑問視され、大部分の遺残組織の腫瘍化は両側性で Leydig 細胞腫瘍の場合は片側性である点に注目されている¹¹⁾。

また hormone 活性という面からは、cortisone を投与した場合に遺残組織がある程度反応することが述べられており^{8, 11)}、Burke et al.¹¹⁾ が不妊を主訴とする睾丸生検で副腎遺残を発見し、乏精子症から不妊への機序として副腎性 androgen が過剰分泌されるため、下垂体性 gonadotropins の分泌が抑制される結果、spermatogenesis に影響がおよぶか、あるいは副腎遺残部の増殖で本来の睾丸実質が圧迫されて精細管に影響をおよぼす結果であろうと推論している。

結 語

陰嚢内の血管腫・リンパ管腫混合型に睾丸周囲の副腎遺残を合併した1例を報告し、現在までの混合型の報告例をまとめ若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は第278回日本泌尿器科学会北陸地方会にお

いて発表した。執筆するにあたり、恩師黒田恭一教授のご校閲に深謝します。

文 献

- 1) Helland, N. J. and Miale, J. B.: Urol., **69**: 708, 1955.
- 2) 岩崎孝史：臨床皮泌，**12**：261, 1957.
- 3) 中神義三：臨泌，**22**：1003, 1968.
- 4) 宮川光生・ほか：泌尿紀要，**12**，1129, 昭和41.
- 5) 阿部礼夫・ほか：日泌尿会誌，**62**：197, 1971.
- 6) 梶本伸一・ほか：日泌尿会誌，**63**：687, 1972.
- 7) Dagonet, J.: Zschr. Heilk., **6**：1, 1885.
- 8) Dahl, E. V.: Amer. J. Path., **40**：587, 1962.
- 9) Schechter, D. C.: Ann. Surg., **167**: 421, 1968.
- 10) Morimoto, Y. et al.: J. Clin. Endocrinol., **32**: 201, 1971.
- 11) Burke, E. F. et al.: J. Urol., **109**: 649, 1973.
- 12) 笹野伸昭：ホと臨，**21** 増刊号：200, 1973.
- 13) 熊谷朗：ホと臨，**16**：363, 1968.

(1976年2月2日受付)