

精巣腫瘍との鑑別が困難であった線維腫様精巣周囲炎の1例

吉岡 慎平¹, 長澤 誠司¹, 貝塚 洋平¹
伊藤 敬², 東郷 容和¹¹川西市立総合医療センター泌尿器科, ²川西市立総合医療センター病理診断科PARATESTICULAR FIBROUS PSEUDOTUMOR DIFFICULT
TO DIFFERENTIATE FROM TESTICULAR TUMOR
—CASE REPORT—Shimpei YOSHIOKA¹, Seiji NAGASAWA¹, Yohei KAIZUKA¹,
Takashi ITO² and Yoshikazu TOGO¹¹The Department of Urology, Kawanishi City Medical Center²The Department of Pathology, Kawanishi City Medical Center

A 74-year-old male patient presented with painless enlargement of the right scrotum that had persisted for three months. His past medical history included a gastrojejunostomy for metastatic gastric cancer and laparoscopic right inguinal hernia repair. Tumor markers were negative. However, an ultrasound examination revealed a mosaic-patterned mass measuring 4 cm in diameter within the scrotum, while an enhanced mass within the right scrotum was shown by contrast-enhanced computed tomography, raising suspicion of a malignant tumor. Consequently, a right high orchiectomy procedure was performed. Following surgery, histopathological examination results showed nodules composed of proliferating fibroblasts and collagen fibers surrounding the affected testis, which included bundles of smooth muscle and bony fragments within. Mild chronic inflammatory cell infiltration, including lymphocytes, plasma cells, and eosinophils, was also noted extending from the perivascular region to the stroma. As a result, a diagnosis of paratesticular fibrous pseudotumor was determined. Findings obtained in the present case revealed a rare condition and indicate that paratesticular fibrous pseudotumor should be considered as a differential diagnosis when a testicular tumor condition is suspected.

(Hinyokika Kiyo 71 : 307-311, 2025 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_71_9_307)

Key words : Paratesticular fibrous pseudotumor, Fibromatous periorchitis, Nodular and diffuse fibrous proliferation, Chronic proliferative periorchitis

結 言

線維腫様精巣周囲炎は、主に陰嚢内精巣鞘膜に発生する良性腫瘍である。陰嚢内に発生する精巣外良性腫瘍としては脂肪腫、腺腫様腫に次いで3番目に多いと報告されている¹⁾。本疾患は術前の臨床および画像診断では精巣腫瘍との鑑別が難しく、精巣摘除や腫瘍摘除が行われたのちに初めて病理組織診断がつくことも多い。今回、われわれは精巣腫瘍を疑って高位精巣摘除術を施行するも、病理結果が線維腫様精巣周囲炎であった1例を経験したため、その臨床経過と病理所見、文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者 : 74歳, 男性

主 訴 : 無痛性右陰嚢腫大

既往歴 : 転移性胃癌 (傍大動脈リンパ節転移 腹膜播種) に対して胃空腸バイパス手術, 術後化学療法 (X-3年), 腹腔鏡下右鼠径ヘルニア修復術 (X-1年)

家族歴 : 父に胃癌の既往あり

現病歴 : 3カ月前から右陰嚢腫大を自覚し近医を受診した。超音波検査で右陰嚢内にモザイク状腫瘍を認め、悪性腫瘍が疑われたため当院を紹介受診となった。

現 症 : 身長 166 cm, 体重 61.5 kg, BT 36.4°C, BP 148/93 mmHg. 触診では右陰嚢内容は硬く、鶏卵大であった。

血液検査所見 : TP 7.6 g/dl, ALB 4.1 g/dl, AST 18 U/l, ALT 12 U/l, CK 146 U/l, ALP 114 U/l, LDH 213 U/l, BUN 14 mg/dl, CRE 1.13 mg/dl, Na 145 mmol/l, K 3.9 mmol/l, Cl 105 mmol/l, CRP 0.49 mg/dl, HbA1c 5.6%, WBC $6.7 \times 10^3 / \mu\text{l}$, RBC $4.27 \times 10^6 / \mu\text{l}$, Hb 11.8 g/dl, Ht 38.6%, PLT $251 \times 10^3 / \mu\text{l}$.

HCG <0.5 mIU/mL, AFP 4.32 ng/mL, 可溶性 IL-2R 1,147 U/mL

尿検査所見 : 比重 1.004, PH 7.0, 蛋白 -, 潜血 -, 糖 -, WBC 0~1/hpf, RBC 0~1/hpf



Fig. 1. Ultrasound examination: A mosaic-patterned mass was observed in the right scrotum.



Fig. 2. Contrast-enhanced CT: A mass lesion with contrast enhancement measuring 35×35×40 mm was observed in the right scrotum.

画像所見：超音波検査で右陰嚢内にモザイク状腫瘍を認めた (Fig. 1)。造影 CT 検査では右陰嚢内に 35×35×40 mm の造影効果をうける腫瘍性病変を認めた (Fig. 2)。

以上より、胃癌の転移や悪性リンパ腫の可能性も含め悪性腫瘍の可能性を否定できず高位精巣摘除術を行った。

手術所見：右鼠径管直上で 6 cm の皮膚切開をおいた。精索をネラトンカテーテルで結紮し、腫瘍を一塊に脱転した。腫瘍は精巣周囲のみならず、精索周囲組織との癒着も強固であった。

ホルマリン固定後の検体写真を (Fig. 3) に示す。正常精巣は周囲の結節によって圧排されていた。

病理学的所見 (Fig. 4)：精巣や精巣上体を取り囲む様に、繊維芽細胞や筋繊維芽細胞と密な膠原線維が増生する結節を認めた。結節内には大小の血管や平滑筋束 (Desmin 免疫染色陽性) および、わずかながら骨片が認められ、血管周囲から間質にかけてリンパ球、形質細胞、好酸球による軽度の慢性炎症細胞浸潤



Fig. 3. The testis was compressed by surrounding nodules.



Fig. 4. Pathological findings: Nodules composed of proliferating fibroblasts, myofibroblasts, and dense collagen fibers were observed surrounding the testis and epididymis.

が見られた。IgG/IgG4 の免疫組織化学では、IgG4 比は正常であった。発生部位の同定は困難であった。

考 察

線維腫様精巣周囲炎は「peritesticular fibromatous mass」として1831年 Cooper によって最初に報告された²⁾。本疾患は良性疾患であるため、精巣腫瘍の取り扱い規約に記載されておらず、「paratesticular fibrous pseudotumor」「nodular and diffuse fibrous proliferation」「chronic proliferative periorchitis」などの多様な名称で呼ばれてきた²⁾。1973年に Mostofi らにより「fibrous pseudotumor」と命名されて以降、この名称が広く使用されるようになった³⁾が近年では「Paratesticular

fibrous pseudotumor (PFP)」の名称を用いられることが多い。

本疾患は傍精巣領域病変の約6%を占める稀な病変であり、30歳代に多いとされる⁴⁾。一般的には良性の腫瘍性病変として認識されているが、その発生原因については明確に解明されていない。外傷や感染、慢性炎症に対する反応性肉芽腫性増殖が原因の1つと考えられており、これにより精巣鞘膜や精索、精巣上体などに発生する良性腫瘍とされる⁴⁾。自験例では、発症の約1年前に右鼠径ヘルニア根治術を施行しており、術後の炎症が精巣周囲に波及したことが発生原因の可能性として考えられた。

組織学的には、瘢痕状の線維化や線維芽細胞の増殖を認め、様々な程度の慢性炎症細胞浸潤を伴う。間質の硝子化や肉芽組織の増生、時に石灰化や骨化、粘液腫様変化を呈することもあるとされる⁴⁾。宮本らの報告によれば、線維化と炎症の程度に基づき、plaque-like pattern, inflammatory sclerotic pattern, myofibroblastic pattern の3亜型に分類されるが、これらの亜型間で臨床症状に顕著な差異は認められず、いずれも予後は良好であるとされている⁵⁾。また、多様な組織学的および免疫組織学的パターンが存在することから、本疾患が単一の要因ではなく、複数の異なる病態プロセスの結果として生じている可能性が指摘されている⁵⁾。自験例は、精巣鞘膜および精索周囲組織に線維芽細胞、筋線維芽細胞、膠原線維の増生による結節性病変が認められ、myofibroblastic pattern 型と考えられた。近年では、IgG4 関連疾患との関連性が指摘されており、Crestani らは2例のPFP患者について、いずれの症例もIgG4 関連疾患を示唆する組織像が確認されたことから、特にIgG4 陽性細胞の比率が高い場合にはIgG4 関連疾患の可能性が示唆されると報告している⁶⁾。しかしながら、すべての症例でIgG4 の関与が確認されるわけではなく、本症例でも特異的な所見は得られなかった。

臨床症状としては、無痛性の陰嚢腫大を主訴に来院されることが多く、悪性腫瘍との鑑別が難しい場合がある。一方で発熱や圧痛といった症状を呈することは少ないことから精巣上体炎との鑑別は可能である。超音波検査の所見は非特異的で、石灰化、硝子化、肉芽組織の程度に応じて様々な画像所見を呈するため、超音波検査単独での診断は困難である⁷⁾。MRI 検査においては、線維成分を反映しT1 強調像で低信号、T2 強調像で低信号、拡散強調像で低信号を示すことが多いと報告されている⁸⁾。祝田らは、超音波で精巣鞘膜由来が疑われる多結節状腫瘍を認め、MRI 検査においてもT1 強調像、T2 強調像、拡散強調像のすべてで低信号を示す場合には、本疾患を鑑別疾患の上位として考えるべきであると報告している⁸⁾。MRI は本

疾患を疑う際の有用な検査であるが、自験例の様に精巣悪性腫瘍を強く疑う場合にはMRI を施行しないケースも多いと推測される。良性腫瘍を疑う場合には術前のMRI 施行も検討される。

線維腫様精巣周囲炎は良性疾患であり、通常は精巣腫瘍で見られる腫瘍マーカー(LDH, AFP, HCG)の上昇は伴わない。実際、本邦報告例いずれにおいてもこれらの腫瘍マーカーは正常範囲内であった。そのため、本疾患と精巣腫瘍との直接的な関連性については乏しいものと考えられる。

精巣外に発生する良性の傍精巣腫瘍のなかでも、線維腫様精巣周囲炎は精巣鞘膜に好発するのに対し、脂肪腫は精索に多く、腺腫様腫瘍、平滑筋腫、結核、サルコイドーシスは精巣上体に好発する¹⁾。また、精巣腫瘍は90%以上が悪性であるのに対し、傍精巣腫瘍は70%が良性であること⁹⁾からも、術前の画像精査で腫瘍の発生が精巣由来か、それ以外かを正確に診断する必要がある。本症例においては、術前の超音波検査では正常精巣は確認できず陰嚢内腫瘍として認めており、造影CT 検査で腫瘍全体に造影効果を認めたことから、悪性疾患を積極的に否定できる所見に乏しかったため、高位精巣摘除術を選択した。

本邦ではHara ら¹⁰⁾が39例の報告をまとめており、その他の報告例^{7,11-17)}および自験例を含めると48例となり、それを集計した(Table)。年齢の中央値は45歳(4~81歳)、患側は右26例、左19例、両側1例、正中1例、不明1例であった。主訴は無痛性陰嚢腫大が42

Table.

年齢	中央値 45歳(4~81歳)
患側	
右	26例
左	19例
両側	1例
正中	1例
不明	1例
主訴	
無痛性陰嚢腫大	42例
有痛性陰嚢腫大	6例
形状	
単発	30例
多発	18例
部位	
精巣鞘膜	20例
精索	7例
精巣上体	8例
不明	13例
治療	
精巣・精巣上体摘除	24例
腫瘍のみ切除	24例

例と多く、形状は単発が30例、多発が18例であった。発生部位は、精巣鞘膜由来が20例、精索由来が7例、精巣上体由来が8例、不明が13例であった。治療については、精巣や精巣上体の摘除を伴った症例が24例、腫瘍のみの切除が行われた症例も24例と、同数である。腫瘍のみ切除された症例では、精巣との癒着はなく剥離が可能であったと報告されている¹⁵⁾。

線維腫様精巣周囲炎は良性疾患であるため、可能な限り精巣を温存する手術が望ましいとされている¹⁸⁾。術中迅速病理診断を用いることで、精巣摘除を回避できた報告例があり¹⁹⁾、実際に最大84%の症例で不要な根治的精巣摘除を回避できる可能性があるとの報告もなされている²⁰⁾。しかし、本邦報告例では、半数が精巣の合併切除術を受けているのが現状である。

精巣温存手術を検討できる条件としては、術前検査で精巣悪性腫瘍の可能性が低く、腫瘍と精巣が明確に離れており、さらに精巣と腫瘍の剥離が容易で、術中迅速病理診断によって悪性腫瘍を否定できる場合が挙げられる。

一方で、術前から精巣悪性腫瘍の可能性が否定できない場合や、精巣と腫瘍の剥離が困難である場合には、精巣合併切除術を行う必要がある。

線維腫様精巣周囲炎の自然経過については十分な報告がないが、腫瘍切除後に局所再発を認めた報告例もあることから^{21,22)}、腫瘍は外科的切除を行い、術後は定期的な画像診断による慎重な経過観察が必要と考えられる。

結 語

精巣腫瘍を疑い高位精巣摘除術を施行したが、線維腫様精巣周囲炎であった症例を経験した。精巣腫瘍を疑った際には本症例を鑑別疾患の1つとして考えるべきである。

なお、本論文の要旨は日本泌尿器科学会第257回関西地方会で発表した。

文 献

- 1) Park SB, Lee WC, Kim JK, et al.: Imaging features of benign solid testicular and paratesticular lesions. *Eur Radiol* **21**: 2226-2234, 2011
- 2) Cooper A: Observations on the structure and diseases of the testis. *Med Chir Rev* **14**: 1-32, 1831
- 3) Mostofi FK and Price EB: Tumors of the male genital system. *Atlas of Tumor Pathology*, 2nd Series, Fascicle 8. AFIP: 1-227, 1973
- 4) 宮居弘輔, 都築豊徳: 精巣腫瘍病理アトラス. 第1版, p 188-191, 文光堂, 東京, 2021
- 5) Miyamoto H, Montgomery EA and Epstein JI: Paratesticular fibrous pseudotumor: a morphologic and immunohistochemical study of 13 cases. *Am J Surg Pathol* **34**: 569-574, 2010
- 6) Crestani A, Vassallo L, Amodeo A, et al.: Paratesticular fibrous pseudotumor with histological features of IgG4-related disease: two case reports and review of the literature. *Gland Surg* **12**: 426-431, 2023
- 7) Kodama H, Hatakeyama S, Matsumoto T, et al.: A case of fibrous pseudotumor in the scrotum: challenge for diagnosis and testicular preservation. *Case Reports in Urology Volume* **2018**: 1-4, 2018
- 8) 祝田勇輝, 成田啓一, 金田 智, ほか: 超音波検査と MRI 検査で陰嚢内多結節状腫瘍の所見を呈した傍精巣線維性偽腫瘍の1例. *Jpn J Med Ultrasonics Vol 51 No 4*: 183-189, 2024
- 9) Khoubehi B, Mishra V, Ali M, et al.: Adult paratesticular tumours. *BJU Int* **90**: 707-715, 2002
- 10) Hara Y, Hattori Y, Tamura Y, et al.: Fibrous pseudotumor occurring on the tunica vaginalis testis. *Nishinohon J Urol* **69**: 455-459, 2007
- 11) Kato T, Takano M, Mizoguchi K, et al.: A case of fibrous pseudotumor originating from tunica vaginalis testis. *Acta Urol Jpn* **51**: 483-486, 2005
- 12) 多田真浩, 蓮見壽史, 松崎純一, ほか: 結節性精巣周囲炎の1例. *臨泌* **56**: 446-447, 2002
- 13) 小林裕章, 金子 剛, 西本紘嗣郎, ほか: 傍精巣領域に発生した Fibrous pseudotumor の1例. *泌尿紀要* **56**: 59-61, 2010
- 14) 山崎安人, 渡辺淳一, 西村直樹, ほか: 精巣腫瘍との鑑別が困難であった炎症性偽腫瘍の1例. *西日泌尿* **75**: 563-567, 2013
- 15) 下木原航太, 服部裕介, 林 悠大朗, ほか: 精巣上体原発線維性偽腫瘍の1例. *泌外* **30**: 1457-1460, 2017
- 16) 日紫喜公輔, 新保正貴, 村石 修, ほか: 超音波断層検査と MRI による診断により精巣温存が可能であった傍精巣線維性偽腫瘍 (Fibrous pseudotumor). *臨泌* **71**: 261-264, 2017
- 17) 海野智之, 伊藤吉三, 斎須和浩, ほか: 術前の画像診断により精巣を温存しえた傍精巣線維性偽腫瘍 (Fibrous pseudotumor). *臨泌* **76**: 497-500, 2022
- 18) Kondoh N, Koh E, Doi Y, et al.: A case of fibrous pseudotumor of the spermatic cord. *Hinyokika Kyo* **34**: 2197-2200, 1988
- 19) Nazim SM, Nusrat A and Kazmi Z: Fibrous pseudotumor of tunica albuginea testis mimicking testicular neoplasm in a young man. *Case Rep Surg* **2018**: 9315864, 2018
- 20) Subik MK, Gordetsky J, Yao JL, et al.: Frozen section assessment in testicular and paratesticular lesions suspicious for malignancy: its role in preventing unnecessary orchiectomy. *Hum Pathol* **43**: 1514-1519, 2012
- 21) Lai FM, Allen PW, Chan LW, et al.: Aggressive fibromatosis of the spermatic cord: a typical lesion in a "new" location. *Am J Clin Pathol* **104**: 403-407, 1995

- 22) Germaine P and Simerman LP: Fibrous pseudotumor of the scrotum. J Ultrasound Med **26**: 133-138, 2007

(Received on January 8, 2025)
(Accepted on May 7, 2025)