

停留精巣に発生した動静脈血管腫の1例

釧路赤十字病院泌尿器科（部長：青木正治）

前田 俊浩*, 青木 正治

釧路赤十字病院病理部（部長：鈴木知勝）

鈴木 知勝

A CASE OF ARTERIOVENOUS HEMANGIOMA OF THE UNDESCENDED TESTIS

Toshihiro MAEDA and Masaharu AOKI

From the Department of Urology, Kushiro Red Cross Hospital

Tomokatsu SUZUKI

From the Department of Pathology, Kushiro Red Cross Hospital

An 8-month-old boy was admitted to our hospital with the complaint of left inguinal pain during his follow-up of left cryptorchism. Computed tomography showed a solid mass with a low density area in the left inguinal region. Tumor markers, including α -fetoprotein and human gonadotropin- β , were normal. Exploration of the left testis by an inguinal approach revealed a reddish mass occupying more than half of the testicular parenchyma and we performed left orchiectomy. The tumor was histopathologically diagnosed as arteriovenous hemangioma.

(Acta Urol. Jpn. 48 : 611-613, 2002)

Key words: Testicular tumor, Arteriovenous hemangioma

緒 言

血管腫が精巣に原発することは非常に稀である。われわれは精巣動静脈血管腫の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：8カ月，男児

主訴：左陰嚢内容の欠損

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2000年11月2日，帝王切開にて出生（37週，体重2,376g）。生下時より左陰嚢内に精巣を触知せず，3カ月検診時に左停留精巣が疑われたため，当院小児科より紹介となった。左外鼠径輪の高さに精巣と思われる小指頭大の腫瘤を触知し，左停留精巣の診断にて経過観察とした。

2001年7月16日（8カ月時），左鼠径部に圧痛を認めるため受診。触診，CT上（Fig. 1），左停留精巣に発生した精巣腫瘍が疑われ，入院となった。

入院時現症：身長72cm，体重7.5kg，体温36.8℃。一般状態は良好。触診にて左鼠径部に軽度の圧痛を伴う超母指頭大で弾性硬の腫瘤を触知した。腫瘤は初診



Fig. 1. Computed tomography showed a mass including a low density area in the left inguinal region.

時に比べ明らかに増大していた。右精巣は触診上，異常を認めなかった。

検査所見：血液一般，生化学検査上異常なし。腫瘍マーカーはhCG- β 0.1 ng/ml 未満と正常で，AFP 19.0 ng/mlであったが，生後8カ月の乳児としては正常範囲内であった¹⁾

CT所見：左鼠径部に一部 low density area を伴う腫瘤（20×20 mm）を認めた（Fig. 1）。骨盤内リンパ節，後腹膜リンパ節の腫脹は認めなかった。

以上より，左停留精巣に発生した精巣腫瘍と診断，

* 現：旭川赤十字病院泌尿器科

悪性の可能性も否定できないため、2001年7月25日試験切開を施行した。

術中所見：左鼠径部切開にて左精巣を露出した。精

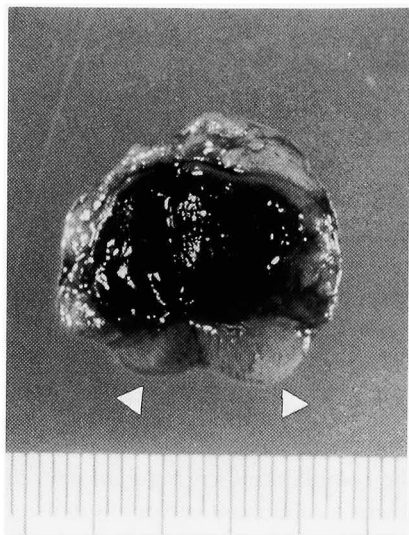
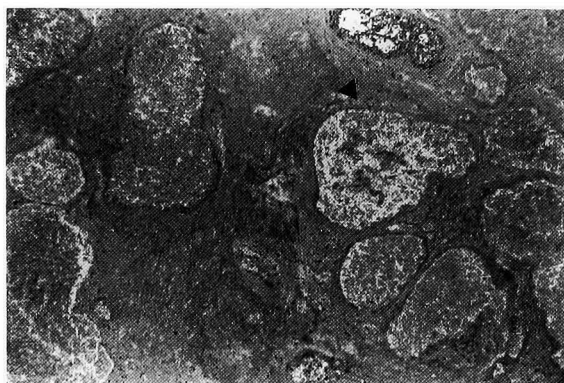
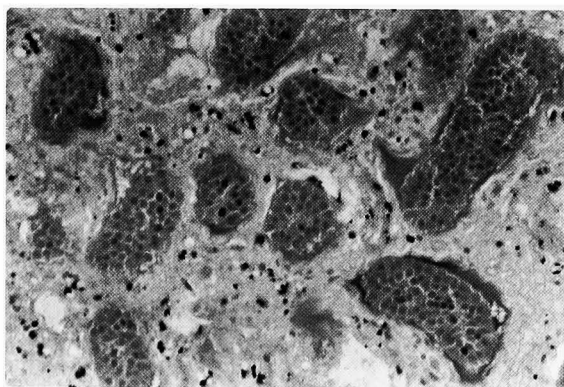


Fig. 2. Gross appearance of cut surface of the left testis. The testicular parenchyma (Δ) is below the tumor.



A



B

Fig. 3. Microscopic appearance of the arteriovenous hemangioma (A) and the testicular tissue (B). A: A vessel like an artery ($\blacktriangle$) is demonstrated (HE stain $\times 100$). B: Seminiferous tubules are necrotic (HE stain $\times 200$).

索の捻転は認めなかった。視触診上、腫瘍の局在は不明瞭であり、精索をクランプ後、精巣に切開を加えた。断面は暗赤色の腫瘍が大部分を占めており、正常な精巣組織と思われる部分はわずかに認めるのみであった。腫瘍核出は不可能であり、悪性腫瘍も否定できないため、精巣摘除術を施行した。

摘出標本：左精巣は 13×20 mm、腫瘍の大きさは 11×13 mm で、断面は暗赤色であった。腫瘍は被膜に包まれており精巣との境界は明瞭であった (Fig. 2)。

病理所見：肉眼的に暗赤色であった部位は、血液を入れた大小の血管の増殖を認めた。その一部に血管壁の肥厚を認め、動脈様構造を有していた。正常と思われた精巣組織はほとんど壊死になっていた (Fig. 3)。悪性所見は認められなかった。

以上より、病理組織学的には動静脈血管腫と診断した。

術後の経過は良好で、2001年8月2日退院。現在経過観察中である。

考 察

血管腫はおもに皮膚、皮下組織、肝臓などに認められ、大部分は先天的に発生する²⁾。その組織型には、毛細血管性血管腫、海綿状血管腫、血管内皮腫、動静脈血管腫などがあり、前二者の頻度が高い。血管腫の多くは良性であるが、悪性血管内皮腫、血管肉腫など悪性も認められる。

血管腫が精巣に発生することは非常に稀であり、1994年に倉岡らが25例 (本邦9例) を集計している³⁾。今回われわれが検索しえたかぎり、自験例を含め、文献上40例、本邦では11例の報告がある。これまで報告されている精巣血管腫の組織型は、海綿状血管腫が18例 (45%) と最も多く、毛細血管性血管腫8例 (20%)、血管内皮腫5例 (12.5%) と続いている。動静脈血管腫は、これまで1例の報告がある⁴⁾が、本症例は本邦では第1例目であった。血管内皮腫に悪性例が1例報告されている⁵⁾が、他の症例において再発、転移例は報告されていない。発症年齢は3カ月から77歳と幅広いが平均24.6歳と若年者に比較的多く、本症例のように1歳未満の症例が5例 (12.5%) 認められた。

精巣血管腫の症状としては無痛性または有痛性陰嚢内容腫大がほとんどであるが、本症例では左停留精巣に発生したため、左鼠径部の圧痛が主症状となった。

これまでに、疼痛を伴った例は自験例を含め8例 (20%) 報告されており、そのうち4例で精巣梗塞を合併していた。疼痛の原因としては血管腫による精巣および周囲組織の圧排が考えられている。本症例では、さらに圧排によると思われる精巣組織の壊死が生

じており, 疼痛の原因となった可能性が高い. 疼痛を伴う例では精巣捻転症, 特発性精巣梗塞との鑑別が必要となることもある⁶⁾

停留精巣において germ cell tumor が正常精巣と比較し 4.7⁷⁾~55⁸⁾倍と高率に発生することが知られているが, 良性腫瘍を含めた germ cell tumor 以外の腫瘍については症例数も少ないため不明である. 本邦においては, 水谷らが停留精巣に発生した性索間質腫瘍を報告している⁹⁾のみとなっている. 文献上, 停留精巣に血管腫が発生したという報告はこれまでなく, 両者の因果関係は不明である.

治療は, ほとんどの症例で精巣摘除が施行されているが, 術中迅速病理診断にて血管腫と診断し, 腫瘍核出術を施行した例¹⁰⁾. 腫瘍核出術後に血管腫と診断された例¹¹⁾なども報告されている. 精巣摘除が行われている理由として, 術前検査にて精巣悪性腫瘍を否定することが難しいこと, また術中所見も剖面が出血性の暗赤色であるため, 悪性との鑑別が困難であることがあげられる. Valla らは腫瘍マーカーが正常範囲内の0~15歳の精巣腫瘍において, 約50%が良性であったと報告し, 術中迅速病理診断を含めた診断, 精巣温存術の重要性を訴えている¹²⁾. 本症例においても腫瘍マーカーは正常範囲内であり, また画像診断も含め, 術前での良性, 悪性の鑑別は困難であったため, 試験切開を行った. 術中所見より精巣の温存は不可能と考え, 術中迅速病理診断は行わずに, 精巣摘除を施行した. 精巣血管腫は非常に稀な疾患であるが, 症例によっては精巣の温存も可能であり, 精巣腫瘍の鑑別診断の1つとして念頭に置く必要があると考えられた.

結 語

乳児の停留精巣に発生した動静脈血管腫の1例を報告するとともに, 若干の文献的考察を行った.

本論文の要旨は第355回日本泌尿器科学会北海道地方会において報告した.

文 献

- 1) 山田一仁, 白木和夫: α -フェトプロテイン 小児内科 臨時増刊号: 220-221, 1985
- 2) Enzinger FM and Weiss SW: Benign tumors and tumorlike lesions of blood vessels. In: soft tissue tumors. Edited by Enzinger FM, Weiss SW. 2nd ed., pp 489-491, The CV Mosby Company, St Louis, 1988
- 3) 倉岡哲郎, 出口恵造, 細川尚三, ほか: 小児精巣毛細血管性血管腫の1例. 泌尿紀要 **40**: 361-363, 1994
- 4) Ricci Z, Koenigsberg M and Whitney K: Sonography of an arteriovenous-type hemangioma of the testis. Am J Roentgenol **174**: 1581-1582, 2000
- 5) 林 郁雄: 再生不良性貧血様症状を伴った睾丸血管内皮腫の1例. 小児診療 **22**: 1098, 1959
- 6) Gharpure KJ, Ahmed YB and Bhargava MK: Cavernous hemangioma of testis with acute testicular infarction—a case report. Indian J Cancer **22**: 73-75, 1985
- 7) Campbell HE: Incidence of malignant growth of the undescended testicle. Arch Surg **44**: 353-369, 1942
- 8) Giwercman A, Grindsted J, Hansen B, et al.: Testicular cancer risk in boys with mal-descended testis: a cohort study. J Urol **138**: 1214-1216, 1987
- 9) 水谷 隆, 福谷恵子, 下川伶子 両側停留睾丸小児に発生した性索間質腫瘍の1例. 泌尿器外科 **4**: 191-193, 1991
- 10) Mazal PR, Kratzik C, Kain R, et al.: Capillary hemangioma of the testis. J Clin Pathol **53**: 641-642, 2000
- 11) Essig M, Knopp MV, Hawighorst H, et al.: MRI of capillary hemangioma of the testis. J Comput Assist Tomogr **21**: 402-404, 1997
- 12) Valla JS for the group D'etude en Urologie Pédiatrique: Testis-sparing surgery for benign testicular tumors in children. J Urol **165**: 2280-2283, 2001

(Received on April 1, 2002)
(Accepted on June 14, 2002)