

辜丸海綿状血管腫の1例

北野病院泌尿器科（部長：中川 隆）

小川 修・吉村 直樹

西村 一男・中川 隆

北野病院内科（部長：室本 仁）

永 田 靖

A CASE OF CAVERNOUS HEMANGIOMA OF TESTIS

Osamu OGAWA, Naoki YOSHIMURA, Kazuo NISHIMURA,
and Takashi NAKAGAWA*From the Department of Urology, Kitano Hospital**(Chief: Dr. T. Nakagawa)*

Yasushi NAGATA

*From the Department of Internal Medicine, Kitano Hospital**(Chief: Dr. H. Muromoto)*

Non-germinal cell tumor of the testis is a rare disease, and vascular tumor of the testis is a still rarer disease. Herein, a case of cavernous hemangioma of the testis is reported.

A 75-year-old man consulted our department with the complaint of a painless left intrascrotal tumor. Laboratory findings revealed slight leukocytopenia and thrombocytopenia of unknown origin. In chest X-ray, a diffuse reticular shadow was shown and it was considered due to pulmonary fibrosis, but, α -fetoprotein and CEA were normal.

Left radical orchiectomy was performed under spinal anesthesia. The tumor existed under the tunica albuginea, and the cutting surface of the tumor was brown and irregular. There were hemorrhagic portions in some places. The left epididymis and the left spermatic cord were normal.

Histologically, the tumor was diagnosed as cavernous hemangioma.

The vascular tumor of the testis is a very rare disease, and only 17 cases have been reported including this case.

This case was the 7th case of cavernous hemangioma of the testis, and the first case in Japan.

This patient died of respiratory failure due to pulmonary fibrosis and pneumonia. In the autopsy, there was no abnormal finding that was considered to be related to the cavernous hemangioma of the testis.

Key words: Testicular tumor, Cavernous hemangioma

緒 言

睾丸に原発する non-germinal cell tumor は比較的まれな疾患で、そのなかでも血管性腫瘍はきわめてまれである。われわれは、睾丸に原発した海綿状血管腫の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：75歳、男性

初診：1983年6月10日

主訴：左陰嚢内腫瘍

家族歴：糖尿病（妹）

現病歴：1983年5月、体幹から上肢にかけての暗紫色大型紅斑を生じ、本院皮膚科に入院。類乾癬、薬疹、菌状肉疣などの疑いにて皮膚生検を施行された。病理組織診にて、血管炎の所見のみであったため、外来経過観察となったが、外来経過観察中、左陰嚢内腫瘍を自覚し、1983年6月10日、当科を紹介され受診した。

入院時現症：身長 156 cm、体重 56 kg、両下肺野に乾性ラ音を聴取し、肝を鎖骨中線下に2横指触知したが表面は平滑であった。また、右側下肢に軽度浮腫を認めた。

左睾丸は、小鶏卵大で、その一部に小指頭大、石状硬の腫瘍を触知した。また、軽度の陰嚢水腫が認められたが、左副睾丸、左精索には触診上異常を認めなかった。

右睾丸、右副睾丸、陰嚢皮膚にもとくに異常を認めなかった。

入院時検査成績

一般検血：RBC $404 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Ht 35.5%、Hb 12.5 g/dl、WBC $2,800/\text{mm}^3$ (St 9%、Seg 28%、Ly

59%、Mo 2%、Aty 2%)、PLT $8.8 \times 10^4/\text{mm}^3$

血液生化学：GOT 118 KU、GPT 34 KU、ALP 10.9 AU、LAP 181 G-RU、LDH 1074 WU、r-GTP 76SIU、T-Bil 0.2 mg/dl、d-Bil 0.2 mg/dl、ZTT 17.5 T-Prot 4.9 g/dl、Alb 2.1 g/dl、Na 133 mEq/L、K 4.3 mEq/L、Cl 99 mEq/L、Ca 4.02 mEq/L、P 1.6 mg/dl、BUN 17.0 mg/dl、Uric acid 4.4 mg/dl、Cre 1.6 mg/dl

血清梅毒反応：ガラス板法（-）、TPHA（-）、CRP +5、RA（-）、直接間接タームス試験（-）、 α -FP 2 ng/ml、CEA 1.0 ng/ml

胸部X線検査：両肺下野に著明な reticular shadow を認めたが転移を思わす陰影は認められなかった。

呼吸機能検査：VC 1,610 ml、%VC 53.7%、FVC_{1.0} 1,120 ml、%FVC_{1.0} 69.6%

心電図 とくに異常を認めなかった。

排泄性腎盂造影：とくに異常を認めなかった。

患者は、当科入院時より全身倦怠感、食意不振が強く、白血球減少、血小板減少、呼吸機能不全もあるため、同年6月18日、内科に転科し精査加療を施行された。

対症療法にて全身状態が好転したため、同年7月22日、左睾丸腫瘍の診断にて腰椎麻酔下に、左高位除睾丸を施行した。

なお、この間、左睾丸内腫瘍の大きさは不変であった。

摘出標本：左睾丸は、3 cm × 2.5 cm で、その内部に 1.5 cm × 1.0 cm の比較的境界明瞭な腫瘍を認めた (Fig. 1)。腫瘍の断面は褐色調不整で、ところどころに赤色調出血斑と思われる部分が存在し、また、石灰化と思われる非常に硬い部分も混在していた (Fig. 2)。



Fig. 1

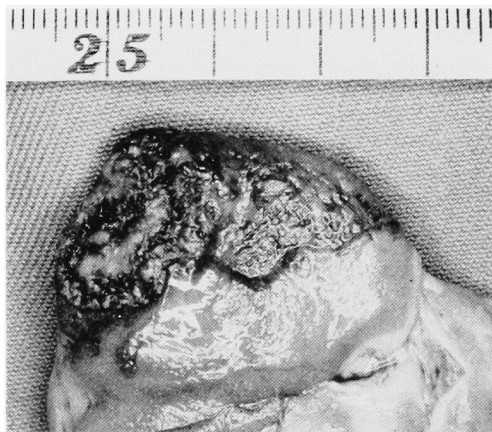


Fig. 2

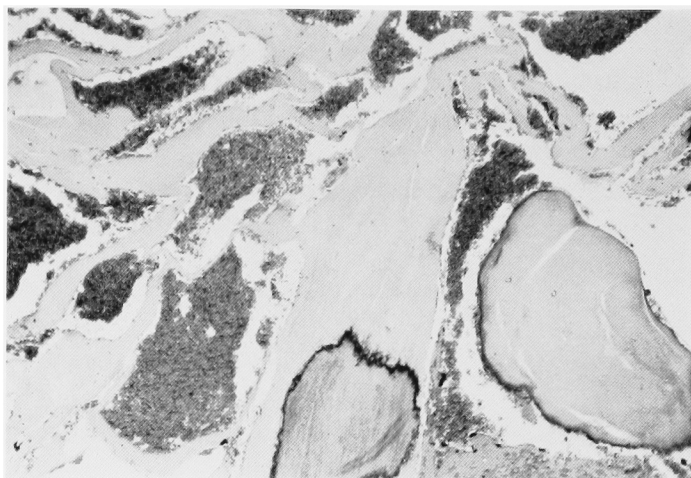


Fig. 3

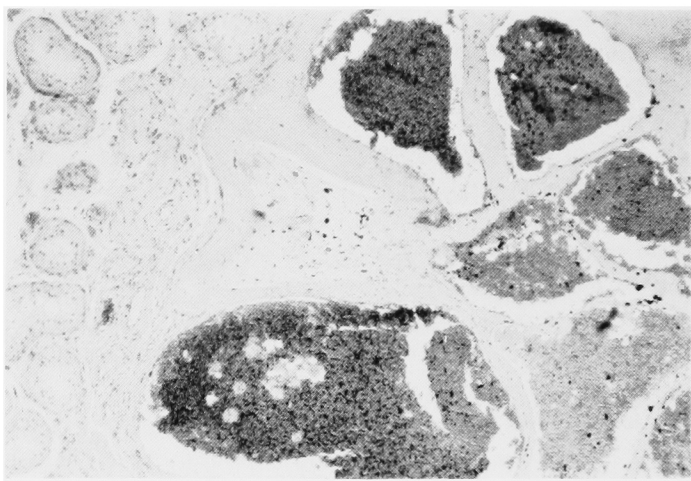


Fig. 4

左副睾丸、左精索には、とくに異常は認められなかった。

病理組織学的検査：腫瘍は全体として、tunica albuginea 内にあり、1層の内皮細胞で被われた大小拡張性の血管増生を主体とし、その間に、硝子様結合組織の増生と、ところどころに石灰沈着を認めた (Fig. 3)。

また、周囲の精細管は萎縮性であるが、年齢的に相応で、異常所見は認められなかった (Fig. 4)。

以上より、病理組織学的には、海綿状血管腫と診断された。

なお、患者は、肺線維症によると思われる呼吸不全が徐々に進行し、1984年2月10日、肺炎にて死亡した。剖検にても、全身臓器に感染症を示唆する所見が

認められるのみであった。また、右睾丸は正常であった。

考 察

睾丸に原発する non-germinal cell tumor は、比較的まれで、Dixon & Moore¹⁾によれば、睾丸腫瘍全体の約3.5%を占めているという。

Non-germinal cell tumor としてもっとも多いのは、Leydig cell tumor を代表とする gonadal stromal tumor であり、血管腫などの間葉系由来の腫瘍報告例は、きわめて少ない。

また、陰嚢血管腫など、intrascrotal extratesticular に発生する血管腫の報告は比較の数多いが、intratesticular tumor としての血管腫の報告はまれである。

われわれが、今回経験した睾丸海綿状血管腫は、国内外の文献上²⁻¹⁷⁾、血管性腫瘍全体として、17例目、海綿状血管腫としては7例目にあたり本邦では、第1例目の睾丸海綿状血管腫と思われる。

現在まで報告された睾丸血管性腫瘍の組織型は、海綿状血管腫6例、毛細血管腫2例、海綿状血管腫と毛細血管腫の混合1例、血管内皮腫4例、外被細胞腫1例、血管芽細胞腫1例、詳細不明2例であった(Table 1)。

Tableは、Kleimanの睾丸海綿状血管腫第1例目の報告⁴⁾以下、全7例^{4-6, 14, 16, 17)}の詳細である(Table 2)。

主訴は、無痛性の陰嚢内腫瘍、もしくは、陰嚢腫大が多く、年齢は、3ヵ月から75歳と広く分布し好発年

齢はとくに無いように思われる。

また、腫瘍断面は、出血性海綿状のものが多く、肉眼的に睾丸悪性腫瘍との鑑別が困難であるため、ほとんどの症例で高位除睾術が施行されている。

血管腫の多くは、先天的な過誤腫と考えられ、また、いっぽう、真の良性腫瘍とみなしうるものもあり、両者の区別は困難である。

今回集計した17例中にも、生下時より存在していたと思われる幼児症例や、既存の血管性腫瘍病変に、なんらかの原因で出血がおこり病変がきらかになったと思われる症例も散見される。

また、血管腫は一般に良性な腫瘍であり、これが悪性化することは通常無いとされている¹⁸⁾。

しかし、現在、血管内皮腫、血管外被腫は、よく分化した良性のものから、悪性度の強い肉腫の性格を持つものまで種々の移行型があるとされ、林らが報告した3歳の血管内皮腫症例⁷⁾は、除睾術後、肺肋膜転移腹腔内転移をきたし死亡している。

しかし、他の症例については、外科療法後再発、転移は報告されていない。

睾丸血管性腫瘍を治療するにあたり、肉腫の性格の腫瘍の存在を考慮し、病理組織学的検索を十分に施行し、血管内皮腫、血管外被腫の場合は、さらに注意深い経過観察が必要と思われる。

なお、本患者は、肺線維症、肺炎による呼吸不全にて死亡したが、剖検時の所見からも睾丸海綿状血管腫との因果関係は無いように思われる。

結 語

睾丸海綿状血管腫の1例を報告するとともに、睾丸血管性腫瘍17例の文献的考察をおこなった。なお、本症例は、睾丸海綿状血管腫の本邦第1例目と思われる。

症例	報告者	年齢	部位	組 織	年代(国名)
(1)	MUTO	2歳	右	血 管 腫	1927(JPN)
(2)	尾 崎	35歳	右	外被細胞腫	1932(JPN)
(3)	KLEIMAN	51歳	左	海綿状血管腫	1944(AUS)
(4)	MOREHEAD	75歳	右	海綿状血管腫	1944(USA)
(5)	ROSENTHAL	3ヵ月	右	海綿状血管腫	1946(USA)
(6)	林	3歳	右	血管内皮腫	1959(JPN)
(7)	大 森	不明	不明	血管芽細胞腫	1965(JPN)
(8)	山 下	小児	不明	血 管 腫	1968(JPN)
(9)	STEIN	23歳	右	血管内皮腫	1975(USA)
(10)	DÉSPOSITO	11ヵ月	左	毛細血管腫	1976(USA)
(11)	久 島	1歳	右	血管内皮腫	1978(JPN)
(12)	CRICCO	26歳	右	血管内皮腫	1980(USA)
(13)	FOSSUM	18歳	左	海綿状血管腫	1981(USA)
(14)	NISTAL	25歳	左	毛細血管腫	1982(SPN)
(15)	SHENTAL	15歳	左	海綿状血管腫 毛細血管腫	1982(ISR)
(16)	FÉL. RÁL	16歳	右	海綿状血管腫	1982(HUN)
(17)	自 験 例	75歳	左	海綿状血管腫	1984(JPN)

Table 1. 睾丸血管性腫瘍報告例

症例	報告者	年齢	主 訴	大きさ (cm)	断面性状	合併症	治 療	文献
1	KLEIMAN	51歳	左陰嚢内容腫大	2 cm径	暗赤色	(一)	放射線療法 左除睾術	J urol 1944
2	MOREHEAD	75歳	右睾丸有痛性腫大	8×6.5×4	褐色海綿状	両側 ソケイヘルニア	腫瘍摘出術	J urol 1944
3	ROSENTHAL	3ヵ月	右陰嚢腫大	不明	不明	右陰嚢水腫	右除睾術	J. urol 1946
4	FOSSUM	18歳	左陰嚢腫大	(4×3×2.5)	出血性囊胞状	急性睾丸壊死	左高位除睾術	Urol 1981
5	SHENTAL	15歳	左睾丸腫大	4×4.5×6	海綿状出血性	(一)	左高位除睾術	Eur urol 1982
6	FEL PAL	16歳	右睾丸痛	(小リンゴ大)	出血性	(一)	右除睾術	Orv Heti 1982
7	自験例	75歳	左陰嚢内腫瘍	1.5×1.0 (3.0×2.5)	褐色調不整	左陰嚢水腫	左高位除睾術	

※()内は、睾丸の大きさ

Table 2. 睾丸海綿状血管腫報告例

本論文の要旨は、第109回日本泌尿器科学会関西地方会にて報告した。

文 献

- 1) Dixon FT and Moore RA Testicular tumors. *Cancer* **6**: 427~454, 1953
- 2) Muto M: Zur Anatomie und Klinik der bosartigen Hodentumoren. *Mitt u allg path Anat Tohoku* **4**: 102~143, 1927
- 3) 尾崎茂樹・辜丸外被細胞腫ノ1例. *日泌尿会誌* **21**: 36~37, 1932
- 4) Kleiman AH: Hemangioma of the testis. *J Urol* **51**: 548, 1944
- 5) Morehead RP and Thomas WW: Cavernous hemangioma of the testicle. *J Urol* **51**: 72, 1944
- 6) Rosenthal AA Hemangioma of the testis in an infant. *J Urol* **55**: 542, 1946
- 7) 林 郁雄: 再生不良性貧血様症状を伴った辜丸血管内皮腫の1例. *小児科診療* **22**: 1098, 1959
- 8) 大森周三郎・池田直昭・松永重昂: 辜丸血管芽細胞腫の1例. *日泌尿会誌* **56**: 893~894, 1965
- 9) 山下和彦・磯部 光: 幼児辜丸腫瘍の3例. *皮膚と泌尿* **30**: 924, 1968
- 10) Stein JJ: Hemangioendothelioma of the testis. *J Urol* **113**: 201~203, 1975
- 11) D'Esposito RF, Ferraro LR and Wogalter H: Hemangioma of the testis in an infant. *J Urol* **116**: 677, 1976
- 12) 久島貞一・富樫正樹・平野哲夫・山田智二・平間元博: 幼児辜丸原発血管腫の1例. *西日泌尿* **40**: 909~912, 1978
- 13) Cricco CF Jr and Buck AS: Hemangioendothelioma of testis. Second reported case. *J Urol* **116**: 677~678, 1980
- 14) Fossum ED, Woods JC and Blight EM Jr: Cavernous hemangioma of testis causing acute testicular infarction. *Urology* **18**: 277~278, 1981
- 15) Nistal M, Paniagua R, Regadera J and Abaurrea MA: Testicular capillary haemangioma. *Br J Urol* **54**: 433, 1982
- 16) Shental J, Fishelovitz J, Sudarsky M and Rizescu J: Hemangioma of the tunica albuginea testis. *Eur Urol* **8**: 370~371, 1982
- 17) Fél Pál. éslmreh Ajtomy: Haemangioma cavernosum testis. *Orvosi Hetilap* **123**: 859, 1982
- 18) 宮地 徹・臨床病理組織学. 44~97, 杏林書院, 東京, 1976

(1985年3月1日受付)