

陰嚢内腫瘍を初発症状とした結節性多発動脈炎の1例

多根総合病院泌尿器科 (部長: 林 美樹)

岸野 辰樹*, 藤本 清秀, 林 美樹

奈良県立医科大学泌尿器科学教室 (主任: 平尾佳彦教授)

百瀬 均, 雄谷 剛士, 大園誠一郎, 平尾 佳彦

奈良県立医科大学第一内科学教室 (主任: 土肥和紘教授)

椎木 英雄, 土肥 和紘

星ヶ丘厚生年金病院検査部

丸 山 博 司

A CASE OF POLYARTERITIS NODOSA PRESENTING
AS A MASS IN SCROTUM

Tatsuki KISHINO, Kiyohide FUJIMOTO and Yoshiki HAYASHI

From the Department of Urology, Tane General Hospital

Hitoshi MOMOSE, Takeshi OTANI, Seiichiro OZONO and Yoshihiko HIRAO

From the Department of Urology, Nara Medical University

Hideo SHINKI and Kazuhiro DOHI

From the 1st Department of Internal Medicine, Nara Medical University

Hiroshi MARUYAMA

From the Department of Laboratory Medicine, Hoshigaoka Koseinenkin Hospital

A 16-year-old boy with a painful tumor in the left scrotum was referred to our department. CT scans showed a low density area in the left testis, so we diagnosed a left testicular tumor and performed left inguinal orchiectomy.

Histological examination revealed polyarteritis nodosa (PN) of the testis and epididymis. Systemic examination revealed no other evidence of PN. Although induration developed in the right epididymis after the operation, it resolved with steroid therapy. The patient is currently asymptomatic and is being followed at our clinic. The pathogenesis and management of this rare condition are discussed.

(Acta Urol. Jpn. 47 : 211-213, 2001)

Key words: Polyarteritis nodosa, Mass in scrotum

緒 言 症 例

結節性多発動脈炎は、一般に多発性および全身性の小・中筋型動脈に壊死性血管炎をきたす炎症性疾患で、血管全層炎を特徴とする予後不良な系統的血管疾患である。

今回、われわれは陰嚢内腫瘍を初発症状とし、他部位の血管には特に病変を認めず、精巣および精巣上体に限局した多発性結節性動脈炎の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。

患者: 16歳, 男性, 学生

主訴: 左陰嚢内有痛性腫瘍

既往歴: 特記事項なし

家族歴: 父が閉塞性血栓性動脈炎, 祖母がパーキンソン病, 祖父が HTLV-1 associated myelopathy (HAM)。

現病歴: 1996年3月頃より左陰嚢内に痛性腫瘍を認め近医を受診。左精巣上体炎の診断下に投薬を受けたが、症状が改善しなかったため精査を希望し同年4月30日当科を受診した。

初診時現症: 身長 165 cm, 体重 48 kg, 体格栄養中等度。体温 36.8度, 血圧 110/72 mmHg, 脈拍86/

* 現: 星ヶ丘厚生年金病院泌尿器科

分・整，表在性リンパ節は触知せず，胸腹部理学的所見に異常を認めなかった．左陰嚢内には左精巣を中心に，一部精巣上体に及ぶ境界不明瞭な圧痛を伴う腫瘍が触知された．

初診時検査成績：末梢血液像では白血球増多および核の左方移動は認めなかった．血液 尿生化学検査では CRP が 3.2 mg/dl と高値を示した以外，特に異常所見は認めなかった．また AFP, β -HCG および CEA はすべて正常範囲内であった．なお尿沈渣にて顕微鏡的血尿を認めた．

画像診断：陰嚢部 CT scan の単純像では左精巣内に low density を示す腫瘍を認め，造影では腫瘍辺縁の著明な濃染像を認めた (Fig. 1)．なお，排泄性尿路造影では異常所見は認めなかった．

以上より，左精巣腫瘍を疑い脊椎麻酔下に手術を施行した．

手術所見：高位切開にて精索を剝離表出し，阻血のうえ陰嚢内容を観察したところ，精巣底部より一部精巣上体にかけて弾性硬な腫瘍を認めた．腫瘍部を含む白膜を切開したところ，精巣実質の一部に正常部と境界明瞭な一部壊死を伴った暗赤色の組織変化を認め，悪性腫瘍を否定しえず，左高位精巣摘除術を施行した．

病理組織学的診断：摘出標本では肉眼的に精巣実質に正常部と境界明瞭な一部壊死を伴った暗赤色の組織変化が認められ，精巣上体頭部にも及んでいた．病理組織学的には精巣と精巣上体の小・中筋型動脈の周囲に壊死性血管炎と微小肉芽腫が多発性に形成されていた (Fig. 2)．

以上より，病理組織学的に精巣および精巣上体に発生した結節性多発動脈炎と診断した．

術後に施行した結節性多発動脈炎に関連した免疫学的検査では CH₅₀ のみ 55.0 IU/ml と高値を示した．なお，HBs 抗原は陰性であった．

臨床経過：術前に異常所見のみられなかった右精巣上体にも術後 1 週目より硬結が出現した．超音波検査

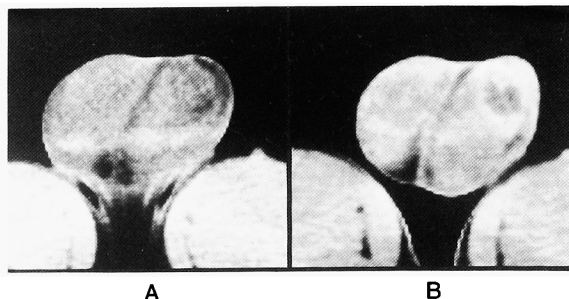


Fig. 1. CT scan of the testes. A: Plain CT scan shows a low density area in the left testis. B: The postcontrast CT scan shows marked peripheral enhancement.

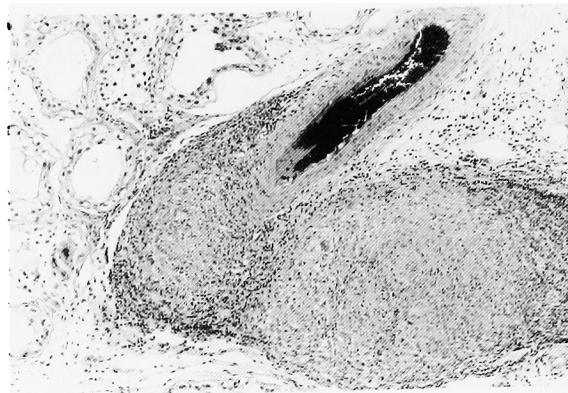


Fig. 2. Necrotizing angitis and micro-granulomas are present in the wall of a medium-sized muscular artery of the left testis.

では特に異常は認めなかったが，MRI にて右精巣内に T2 強調像で低信号を示し，ダイナミック MRI で造影されない索状構造物が認められ血管炎による壊死と考えられた (Fig. 3)．結節性多発動脈炎について診断と治療を目的として，1996年5月16日に奈良県立医科大学第一内科に転院した．全身の画像診断を行ったが，胸部 CT およびガリウムシンチグラフィにて異常所見は認められず，腹部超音波検査では脾腫が認められたのみであった．頭部 MR アンギオグラフィおよび腹部・骨盤部の血管撮影では血管系に異常を認めなかった．また，血清クレアチニンは 1.0 mg/dl で 24時間クレアチニークリアランスは 114 ml/min で腎機能は正常であり，腎生検においても明らかな血管炎はなく異常を認めなかった．したがって，精巣および精巣上体に限局した結節性多発動脈炎として，5月17日より酢酸プレドニゾロン 1日 50 mg の経口投与を開始した．内服開始 4 週間後より右精巣上体の硬結は軽快し，6 週間後には触診上は正常となった．全身状態は良好であり，6月28日より酢酸プレドニゾロンの内服量を漸減したが，炎症所見の増悪がみられなかったので 8月7日退院とした．

その後，外来にて酢酸プレドニゾロンを 1日 20 mg 投与して経過観察し，異常が認められなかった

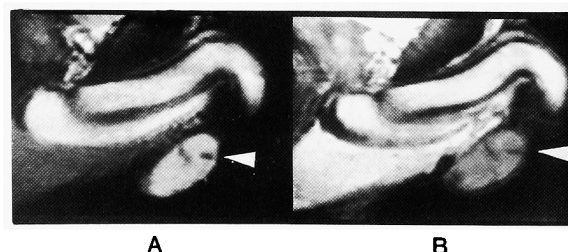


Fig. 3. MRI of the right testis. A: MRI (T2WI) reveals a low intensity area in the right testis. B: The post-contrast MRI shows no enhancement by Gd-DTP.

め 7.5 mg まで漸減した。退院後 3 年 8 カ月経過した現在, 全身状態は良好で再発を認めていない。

考 察

結節性多発動脈炎は全身の小型 中型の筋型動脈にみられる壊死性血管炎で¹⁾, 原因は不明であるが過敏症が関与しているとされており, 薬物, ワクチン, 細菌感染, ウイルス感染などが発症と関係していると考えられている。しかし, 自験例では薬物, ワクチンの投与の既往はなく, またウイルス感染も認められないことから, 原因については明らかではない。

結節性多発動脈炎の診断に関して, 本邦においては厚生省悪性関節リウマチ・結節性動脈周囲炎調査研究班が診断基準を提唱している²⁾ 本診断基準は発熱・体重減少その他多彩な症候からなる 12 項目の主要症候と組織所見に加えて, 血管造影所見, 白血球増加 血小板増加などの参考となる検査所見, および 5 つの除外項目で構成されているが²⁾, 自験例においては主要症状に該当するものはなく, 組織所見のみが診断基準と合致していた。

一方長沢²⁾は血管炎の拡がりから結節性多発動脈炎を全身性と限局性に分類することを提案している。Ito ら³⁾は胆嚢と脾臓に各々限局性の壊死性動脈炎を認めた 2 症例を報告し, これらが結節性多発動脈炎の初期段階であるのか独立した他疾患であるのかの鑑別は困難であると述べている。結節性多発動脈炎の男性症例において精巣病変は 2~18% にみられ, 剖検例では 60~86% に精巣病変が認められると報告されている⁴⁾ しかし, 陰嚢内臓器のみに限局した症例は少なく, その診断も困難であるとされている^{5~7)} Huisman ら⁷⁾は, 陰嚢内病変のみを呈する症例において他臓器病変の検索を目的とした生検は診断価値が低く有用でないとし, むしろ結節性多発動脈炎の初期症状である可能性を重視し, 厳重に経過観察を行うべきであると述べている。井上⁸⁾は前腕部の皮膚結節性病変を伴った陰嚢内の限局性結節性多発動脈炎の 1 例を報告し, 限局性結節性多発動脈炎の場合には皮膚症状の合併頻度が高いと述べている。自験例では, 初診時には皮膚症状を含めて陰嚢内腫瘍以外の症状を認めなかったが, その後対側精巣上体に血管炎を疑わせる病変が出現していることから, 左精巣病変を初発病変とする結節性多発動脈炎であったものと思われる。

井上⁸⁾は, 陰嚢内腫瘍を先行病変とする結節性多発動脈炎の約 77% で腫瘍性病変が疑われ, 精巣摘除術 精巣上体摘除術が行われていると報告している。自験例でも患者年齢や各種検査所見に精巣腫瘍を否定する因子や, また他疾患を積極的に示唆する因子が認められず, 精巣腫瘍の術前診断にしたがって高位切開にて手術を行った。自験例では精巣動脈の阻血後, 病変部断面の肉眼的所見にしたがって高位精巣摘除術を施行したが, 術中迅速病理診断を用いた上で, より積極的に精巣温存を図っても良かったと思われる。

結 語

陰嚢内腫瘍を初発症状とした結節性多発動脈炎の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第 157 回日本泌尿器科学会関西地方会で発表した。

文 献

- 1) Mannik M and Gilliland BG: Vasculitis. In: Harrison's Principles of Internal Medicine. Edited by Adams RD, Braunwald E, Isselbacher KJ, et al. 8th, ed. pp. 431-433, McGraw-Hill, New York, 1977
- 2) 長沢俊彦: 結節性多発動脈炎の診断基準, 病型分類. 内科 **65**: 1286-1287, 1990
- 3) Ito M, Sano K, Inaba H, et al.: Localized necrotizing arteritis. Arch Pathol Lab Med **115**: 780, 1991
- 4) Shurbaji MS and Epstein JI: Testicular vasculitis: implications for systemic disease. Hum Pathol **19**: 186-189, 1988
- 5) Roy JB, Hamblin DW and Brown CH: Periarthritis nodosa of epididymis. Urology **10**: 62-63, 1977
- 6) Mclean NR and Burnett RA: Polyarteritis nodosa of epididymis. Urology **21**: 70-71, 1983
- 7) Thomas K, William T Jr and George R: Polyarteritis nodosa masquerading as a primary testicular neoplasm: a case report and review of the literature. J Urol **144**: 1236-1238, 1990
- 8) 井上雄一郎, 山下元幸, 執印太郎: 精巣上体腫瘍を形成した限局性結節性多発動脈炎の 1 例. 泌尿紀要 **43**: 895-897, 1997

(Received on May 15, 2000)
(Accepted on September 10, 2000)