

精索の閉塞性血栓性血管炎の1例

藤崎病院泌尿器科 (院長: 藤崎伸太)

桑原 守正, 松下 和弘, 中村 晃二

吉永 英俊*, 安芸 雅史**, 藤崎 伸太

高知医科大学第2病理学教室 (主任: 大脇祐治教授)

降幡 睦夫, 大脇 祐治

THROMBOANGIITIS OBLITERANS OF THE SPERMATIC CORD: A CASE REPORT

Morimasa Kuwahara, Kazuhiro Matsushita, Koji Nakamura,
Hidetoshi Yoshinaga, Masashi Aki and Nobuta Fujisaki

From the Department of Urology, Fujisaki Hospital

Mutsuo Furihata and Yuji Ohtsuki

From the Second Department of Pathology, Kochi Medical School

A 61-year-old man was admitted to our hospital with a 8-day history of dull pain and swelling in the bilateral scrotum and bilateral inguinal region. Neoplasma of the spermatic cord was suspected, and bilateral orchiectomy was immediately carried out. Histopathological examination revealed thromboangiitis obliterans of the spermatic cord.

The differential diagnosis of a tumorous lesion in the inguinal region is frequently difficult. In such a case, surgical exploration is recommended, and a biopsy must be performed for a definitive diagnosis, but orchiectomy should not be readily selected. Our patient is the first reported case in Japan to our knowledge.

(Acta Urol. Jpn. 39: 369-372, 1993)

Key words: Spermatic cord, Thromboangiitis obliterans

緒 言

蔓静脈叢の血栓症が外傷や感染の結果として発症するのは周知の事実であるが、精索に原因不明の閉塞性血栓性血管炎が発症し、しかも両側が侵されることはきわめて稀である。われわれは、本邦第1例目と考えられる症例を経験したのでその成因、鑑別診断および治療法などについて考察を試みた。

症 例

患者: 61歳, 男性

主訴: 両側鼠径部から陰嚢にかけての疼痛を伴う腫脹。

家族歴・既往歴: 特記すべきことはなく、喫煙の習

慣はない。

現病歴: 1990年5月18日より両側鼠径部が腫大し、しだいに陰嚢まで波及し、痛みが出現してきたために某医を受診、両側精巣上体炎の診断で治療を受けていたが軽快せず本院を紹介され、同年5月25日に来院し、即日入院となった。

現症: 身長 161.5 cm, 体重 62.8 kg, 血圧 138/80 mmHg. 脈拍68分(整), 体温 36.8°C. 胸腹部および上・下肢に理学的異常所見は認められなかった。両側の鼠径部から陰嚢にかけて皮膚は発赤し、両側の精索は著明に腫大していた。腫大した精索には数カ所に hard nodules を触知した。精巣・精巣上体はやや腫大気味ではあったが、特別な異常所見はなく、圧痛もなかった。直腸指診で前立腺に異常は認められなかった。

入院時検査成績: 一般検血・生化学検査・血液凝固系・免疫グロブリン・尿沈渣には特別な異常は認めら

* 現: 佐賀医科大学泌尿器科学教室

**現: 徳島大学医学部泌尿器科学教室

れなかった。腫瘍マーカー；AFP 2.6 ng/ml (10以下)， β HCG 0.1 ng/ml (0.2以下)。その他；RA (-)，WA (-)，ESR 32 mm/hr，抗核抗体 (-)，LE細胞 (-)，CRP 1+。X線検査；KUB，UCG，IVPに異常はなく，骨盤部CTスキャンで精嚢腺は正常であった。

入院後経過：精索の悪性neoplasmaの疑いにて入院後，ただちに開放手術を行い高位精嚢摘除術を施行した。術後経過は良好であった。

摘出標本：左右精索動静脈は著明に腫大・蛇行して，ところどころにhard nodulesを伴い，全体として硬い索状物として触れた。断面は黄色調・充実性で散在性に暗赤色の血栓がみられ，また内腔が著しく狭小化もしくは閉塞を呈している血管も認められた。なお精嚢・精嚢上体および精管には肉眼的には異常は認められなかった (Fig. 1)。

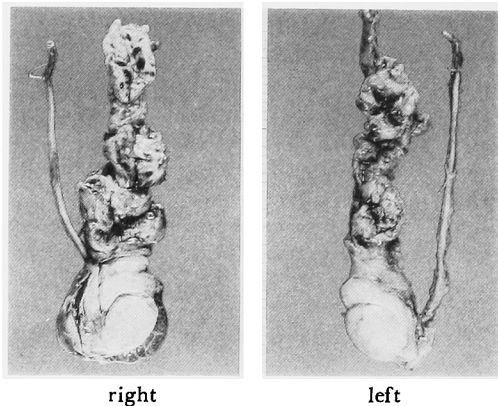


Fig. 1. Resected specimens. The cut surface of the hard nodules of the spermatic cord was yellow and solid. The blood vessels in the area were occluded with a dark red thrombus. No abnormalities were detected macroscopically in the testes or epididymis or vas deferens.

病理組織像：組織学的には左右精索動静脈とも，内腔は狭小化もしくは閉塞し血栓形成を認め，血管壁は肉芽増生，炎症細胞浸潤により著明な肥厚を呈し，器質化の進行した部位では新生血管増生による再疎通も見られた。炎症反応は全層性におよび，リンパ球が主体で形質細胞と少数ながら好中球を混在し，肉芽組織内では線維芽細胞や少数の多核巨細胞の出現も認めた。精索動脈では内弾性板の破壊と中膜主体の錯綜する平滑筋や線維増生を見た。なお周囲の小動静脈には血栓形成はなく血管炎もごく一部に軽度認められるのみであったが間質には高度な浮腫を認めた。アテローム変性病巣や石灰化は見られなかった。以上より精索に

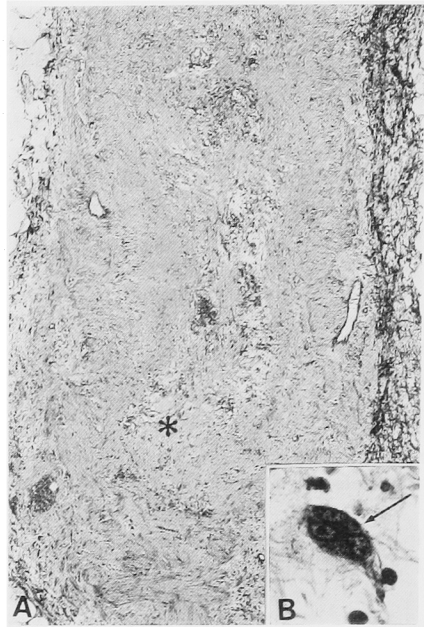


Fig. 2. Histopathologic findings. A. Right testicular artery. The lumen is markedly narrowed by organization of thrombi due to granulation tissue accompanied by recanalization(*). (HE staining $\times 160$) B. Multinucleated giant cells (arrows) are occasionally observed in the stroma around the site of angiitis. (HE staining $\times 520$)

における両側性の閉塞性血栓性血管炎と考えた (Fig. 2-A, B)。

両側精嚢は萎縮性であり，右精嚢ではリンパ球主体の炎症細胞浸潤とフィブリンの析出および部分的には出血を認めたが，左精嚢には炎症性変化をみず，精嚢上体および精管には左右とも著変は見られなかった。

考 察

精索の閉塞性血栓性血管炎に関する多くの報告で1935年の McGavin¹⁾ によるものが第1例目とされているが，1904年に Senn により報告²⁾されたものが最初と思われる。その後，いくつかの報告が見られ³⁻¹⁰⁾，われわれが調べたかぎりでは不明の症例を除いて詳細の明らかな症例は自験例も含めて13例にすぎない (Table 1)。20～30代の若い年齢層に好発 (13例中8例) し，患側は自験例を除いてすべて左側であり本症例のように両側に発症した例は皆無であり，本邦では第1例目の症例と思われる。

本症の精索での局所発病に関する病因については，病理組織像より何等かの感染を求めるもの¹¹⁾，血管収縮物質が増加していることから副腎機能亢進症が原因

Table 1. Review of 13 cases of thromboangiitis obliterans of the spermatic cord

No. 報告者	年齢	患側	症 状 (持続期間)	術前診断	治 療	病理診断	備 考	報告年
1. Senn ²⁾	?	左	陰嚢部の鈍痛・腫脹(?)	精索上体結核	腫瘍部切除	血栓性静脈炎		1904
	(young)							
2. McGregor ³⁾	28	左	陰嚢部の疝痛(3カ月)	精索上体結核	高位精索摘除術	Buerger 病	煙草	1929
3. McGavin ¹⁾	41	左	陰嚢～鼠径部の鈍痛・腫脹(5週)	精索上体結核	高位精索摘除術	血栓		1935
4. McGavin ¹⁾	57	左	陰嚢～鼠径部の鈍痛・腫脹(4週)	精索上体結核	高位精索摘除術	血栓		1935
5. Tartakoff ⁴⁾	28	左	陰嚢～鼠径部の違和感・圧痛(4週)	?	高位精索摘除術	血栓性血管炎	煙草	1938
6. Mathé ⁵⁾	53	左	陰嚢～鼠径部の鈍痛・腫脹(?)	急性精囊腺炎	高位精索摘除術	Buerger 病に類似		1940
				neoplasma				
7. Mathis ⁶⁾	50	左	陰嚢～鼠径部の鈍痛・腫脹(10日)	neoplasma	高位精索摘除術	Buerger 病	下肢 Buerger 病	1951
8. Nesbit ⁷⁾	26	左	陰嚢部の鈍痛・腫脹(6週)	蔓精脈叢の血栓	高位精索摘除術 (術中に neoplasma が疑われた.)	血栓性静脈炎	精索静脈瘤	1960
9. Nesbit ⁷⁾	24	左	陰嚢部の充実性腫瘍(2週)	精索上体結核	腫瘍部切除	Buerger 病の 急性期	煙草	1960
10. Abercrombie ⁸⁾	31	左	陰嚢部の充実性腫瘍(3-4カ月)	精索上体結核	精管・精索上体・ 腫瘍部切除	血栓性静脈炎		1965
11. Anselme ⁹⁾	27	左	陰嚢～鼠径部の鈍痛(16時間)	精索捻転	開放生検	血栓を伴った 肉芽腫性静脈炎		1977
12. Vincent ¹⁰⁾	33	左	陰部の不快感・鈍痛(11日)	嵌頓ヘルニア	腫瘍部切除	静脈血栓症		1981
13. 自 験 例	61	両側	陰嚢～鼠径部の鈍痛・腫脹(8日)	neoplasma	高位精索摘除術	閉塞性血栓性血管炎		

とするもの¹²⁾, さらには Buerger 病の一部分症とする説^{3,13,14)} など諸説さまざまである。危険因子として長時間の座位および患側が左側に多いことより精索静脈瘤などが考えられており, 特に喫煙が強調されている^{1,3,4,8)}。しかし報告例のいずれにも明らかな誘因はなく発症しており, 喫煙の習慣がある例は13例中3例と少なく, 精索静脈瘤の合併が認められたのは1例にすぎないことなどからこれらを特別な危険因子とするのは疑問が残る。自験例は外傷の既往はなく喫煙の習慣もなく, さらに syphilis や淋疾などの感染が否定され, 術前の IVP で腎静脈の血栓症を疑う所見も存在せず, 血液凝固系にも異常はなく, 全身の理学所見より Buerger 病を疑わしめるものが存在しなかったことなどよりまったくの特発性といわざるをえない。

一般に, 臨床症状は陰嚢部から鼠径部にかけての鈍痛と腫脹ではじまり, 腫脹と痛みは徐々に増悪してきて皮膚は全体に赤みを帯びてくる。発熱はほとんどなくあっても軽度であり, 痛みは歩けない程のものではない。理学所見では精索はほぼ正常の大きさで圧痛はなく, 精索上体は比較的異常所見に乏しい。精索は全体に腫脹しておりところどころに hard あるいは tender nodules を触知し, 軽度の圧痛を認める。病態は時期により異なるために鼠径部から陰嚢部にかけて腫瘍性病変を形成する他の疾患, 特に精索上体結核, 精索の悪性新生物や精索捻転との鑑別は容易でなく, 報告例を検討すると, 術前に精索上体の結核として診断されたものが13例中6例と圧倒的に多く, その他に

は精索の neoplasma 3例, 嵌頓ヘルニア1例, 精索捻転1例, 不明1例である。なお1例は術前に精索の蔓精脈叢の血栓症と診断されて保存治療が行われていたが経過中に精索の腫瘍が増大してきたために開放手術を施行したところ neoplasma が疑われ高位精索摘除術が行われている。自験例は術前に炎症所見が存在したが, 両側の精索に大小不同の圧痛を伴わない充実性の腫瘍が触知され精索の neoplasma が否定できず開放手術を施行したものでありその鑑別診断の困難さを示唆するものである。

治療は13例中8例に高位精索摘除術が行われていて, これらの術前・術中診断は精索上体結核が3例, neoplasma が4例, 不明1例である。開放生検が1例に, 病変部腫瘍の切除が3例に, 精管・精索上体および病変部腫瘍の切除が1例に施行され, これら5例は術後に何等かの保存療法が行われ, 本症の再発および精索の萎縮は認められていない。精索の栄養動脈は内精動脈, 精管動脈, 精索挙筋動脈の3本であり, また内・外精索静脈の2本で還流されており, これらは精索内で多彩な吻合を呈している。Griffith ら¹⁵⁾によれば内精動脈のみで栄養されている精索は7%にすぎないとされており, 病理組織学的に精索に梗塞所見が認められない場合には本症の確定診断ができれば前述のように精索の血流は豊富なので病変部腫瘍を可及的に切除し精索を極力温存し, その後安静・保温・抗凝固剤・ビタミン B₆・ステロイド剤などの投与を試み経過観察するのも一つの方法かとも思える。また本症の

原因を Buerger 病の一部分症として考えるならば、術前に本症の確診がえられることを条件に開放手術を行うことなくプロスタグランジン E₁ の投与や腰部交感神経ブロック・切除を試みるのも一法であるが、本症の診断の困難さと Buerger 病と結論するには至っていないことよりこれらは非現実的な方法と思われる。

本症は鼠径部～陰囊部の腫瘍性病変、ことに悪性疾患との鑑別を非観血的に行うことは現実には困難であるから開放手術を躊躇すべきではなく、そのうえで病変部を生検し、迅速病理にて本症の診断が確定すれば精巣の温存と自覚症状の軽減の目的で病変部腫瘍のみの切除にとどめるべきと思われる。

結 語

61歳、男性。両側の鼠径部から陰囊にかけての疼痛と腫脹を主訴として来院。精索の neoplasma が疑われ、高位精巣摘除術を施行したところ病理学的には悪性所見はなく、精索の閉塞性血栓性血管炎と診断された。自験例は本症の本邦第1例目の報告と思われる。

本症の成因、鑑別診断および治療法などにつき考察を行った。

本論文の要旨は第80回日本泌尿器科学会総会にて発表した。

文 献

- 1) McGavin D, Camb MB and Eng FRCS: Thrombosis of the pampiniform plexus. *Lancet* 17: 368-369, 1935
- 2) Senn N: Visical calculus; Thrombosis of the spermatic veins; Cervical tuberculous lymphadenitis; Sarcoma of the submaxillary gland; Syndatylus; Traction injury of the peroneal nerve; Paralysis of the circumflex nerve; Rachitis; Acute osteomyelitis of the os calcis; Adenomatous goiter; Ganglion. *Int Clin* 4: 148-160, 1904
- 3) McGregor AL and Simson FW: Thromboangiitis obliterans: with special reference to a case involving the spermatic vessels. *Br J Surg* 16: 539-554, 1929
- 4) Tartakoff J and Hazard JB: Thromboangiitis obliterans of the spermatic cord. *N Engl J Med* 218: 173-175, 1938
- 5) Mathé CP: Thrombo-angiitis Obliterans (Buerger's disease) of the spermatic arteries: report of case. *J Urol* 44: 768-776, 1940
- 6) Mathis RI and Clart AJ: Spontaneous phlebothrombosis of spermatic plexus in Leo Buerger's disease. *Rev Assoc Med Argent* 65: 434-435, 1951
- 7) Nesbit RM and Hodgson NB: Thromboangiitis obliterans of the spermatic cord. *J Urol* 83: 445-447, 1960
- 8) Abercrombie GF: Thromboangiitis obliterans of the spermatic cord. *Br J Surg* 52: 632-633, 1965
- 9) Anselme P: A case of spontaneous thrombosis of the pampiniform plexus of the testis. *NZJ Surg* 47: 801-802, 1977
- 10) Vincent MP and Bokinsky G: Spontaneous thrombosis of pampiniform plexus. *Urology* 17: 175-176, 1981
- 11) Rabinowitz HM: Experiments on the infectious origin of thromboangiitis obliterans and the isolation of a specific organism from the blood stream. *Surg Gynecol Obstet* 27: 353-360, 1923
- 12) Sachs W: Thromboangiitis obliterans—"Arteriotic gangrene" (Oppel): A preliminary note on the etiology and treatment. *J Med Assoc S Africa* 15: 215-217, 1927
- 13) Buerger L: The pathological and clinical aspects of thromboangiitis obliterans. *Am J Med Sci* 154: 319-328, 1917
- 14) Birnbaum W, Prinzmetal M and Connor CL: Generalized thrombo-angiitis obliterans: report of a case with involvement of retinal vessels and suprarenal infarction. *Arch Int Med* 53: 410-422, 1934
- 15) Griffith J: The effect upon the testis of ligation of the spermatic veins, and of both artery and veins. *J Anat Physiol* 30: 81-105, 1896

(Received on October 26, 1992)
(Accepted on December 29, 1992)

(迅速掲載)