

小児に発生した陰嚢内血管腫の1例

山口大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 内藤克輔教授)

平田 寛, 大見千英高, 高井 公雄, 内藤 克輔

INTRASCROTAL HEMANGIOMA IN A CHILD: A CASE REPORT

Hiroshi HIRATA, Chietaka OHMI, Kimio TAKAI and Katsusuke NAITO

From the Department of Urology, Yamaguchi University School of Medicine

The patient was a boy two years and six months old. He was brought to our University Hospital with the chief complaint of scrotal mass for two years. On palpation, the mass was discriminated from the testis, epididymis and spermatic cord. The mass was followed by ultrasonography and we found two masses at the age of two years and six months. The tumors were surgically resected and they were $0.5 \times 0.5 \times 0.5$ cm, $1.5 \times 1.0 \times 0.5$ cm in size, respectively. Histopathological examination revealed venous and capillary hemangioma. We discuss this case, and review the literature.

(Acta Urol. Jpn. 48 : 491-493, 2002)

Key words: Intrascrotal mass, Hemangioma

緒 言

陰嚢内血管腫は比較的稀な良性疾患である。最近2歳6カ月男児に発生した陰嚢内血管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 2歳6カ月, 男児

主訴: 無痛性陰嚢内腫瘍

既往歴: 特記事項なし

現病歴: 生後4カ月, 母親が正中やや左陰嚢内に大豆大の腫瘍を触知, 6カ月検診でも同腫瘍を指摘されるもそのまま放置していた。1歳6カ月検診にて同腫瘍を指摘され近医を受診。2000年7月5日当科紹介初診した。成長発達に異常なく, 触診上陰嚢正中やや左方内に精巣, 精巣上体および精索とは別に表面不整な大豆大の腫瘍を認め, 圧痛はなかった。血液, 尿検査にて異常を認めず, 陰嚢超音波断層法で精巣, 精索, 精巣上体とは区別できる 0.7×0.7 cm の iso-hypoechoic lesion を認めた。悪性疾患ではないと判断し, その後外来にて陰嚢超音波断層法にて定期的に経過観察するも2001年5月16日陰嚢縫線下から左方に凹凸不整な小指頭大, 示指頭大の2個の腫瘍を認めた。

検査所見: 血液, 尿検査では異常を認めず 超音波断層法で陰嚢内に 1.5×1.0 cm, 0.5×0.5 cm の iso-hypoechoic lesion を認めた。以上部位が縫線近傍ということで median raphe cyst や個数が増加したことより増大傾向を示す血管腫を疑い, 2001年6月19日陰嚢内腫瘍摘除術を施行した。

手術所見: 全身麻酔下。陰嚢腫瘍直上に皮膚横切開



Fig. 1. Macroscopic appearance of the surgical specimen. Two solid tumors were seen with hemorrhage.

を加え, 陰嚢内腫瘍を周囲組織より剝離した。この時両側精巣とは容易に分離され, 2個の腫瘍は索状物でつながっていた (Fig. 1)。

病理組織所見: 2個の腫瘍とも H-E 染色では capillary-vein よりなる血管の拡張, 増生が認められ capillary and venous hemangioma と診断された (Fig. 2)。

経過: 術後経過良好で6月21日退院。8月6日の時点で再発を認めていない。

考 察

血管腫は血管組織からなる腫瘍様の先天的組織奇形で¹⁾, Gary ら²⁾によると血管腫でも陰嚢内に発生する血管腫は全血管腫の1~2%と報告しており稀な良性疾患である。1937年に Gibson ら³⁾は陰嚢に発生す



Fig. 2. Microscopic findings of the part of venous hemangioma (×20).

る血管腫を陰囊真皮より発生する hemangioma of the skin 陰囊皮下組織から発生する hemangioma of the subcutaneous tissue とに分類した。前者は angiokeratoma として多くの報告があり、本症例は後者に属し稀である。本邦では1958年に岩崎ら⁴⁾が最初は陰囊内血管腫を報告して以来2000年に Konya ら⁵⁾が報告した43例が報告されている。

大半の血管腫は生下時すでに存在し成長とともに増大するという報告があり、Mark ら⁶⁾血管腫の自然退縮は生後6カ月から1歳6カ月で始まり稀に5歳まで続くことがあるとも報告している。

Ferrer ら⁷⁾は陰囊内血管腫は2歳までに存在し生育とともに発育すると報告している。好発年齢としては生下時から2歳までで本症例もこの期間にあたりと考えられるが、本邦での報告例をみると受診年齢は1歳から75歳までで2歳以下は全体の10%程度にとどまっているようである。

陰囊内血管腫は皮膚が青色調で弾性の無痛性の陰囊腫瘍を認めれば血管腫が疑われるが術前に診断できる報告例は少なく⁸⁾。超音波断層法でも血管腫と完全に断定するのは困難である。触診上精巣、精巣上体、精索との境界が不明瞭な場合は他の疾患との鑑別が必要となる。鑑別診断を必要とする疾患としては、良性疾患では leiomyoma, neurofibroma, angiomyxoma, lipoblastoma, lipoma, epidermoidcyst⁹⁾ などがあげられ、縫線下に存在するならば今回われわれが術前疑った median raphe cyst¹⁰⁾ などがあげられる。悪性疾患としては rhabdomyosarcoma, myxoid liposarcoma, malignant schwannoma などがあげられる。

陰囊内血管腫と合併奇形や全身性疾患との関連は報告例なく、本症例も奇形の合併や全身性疾患を認めな

かった。

治療方法としては、血管腫の破裂や大量出血の可能性はきわめて稀といわれているが⁷⁾、悪性疾患の危険性、美容上の問題、そして不完全な自然退縮の可能性があるため外科的切除が勧められている。腫瘍が大きい場合には骨盤動脈造影を施行し腫瘍への支配血管の同定や動脈塞栓術が有効であったという報告もある¹¹⁾。術後は再発などの報告はなく比較的予後良好である。

合併症として hemangioma が巨大化した症例で陰囊内の温度上昇が原因で不妊となった報告例もあり¹²⁾、巨大血管腫が若年者に認められた場合には術前の十分な説明と、精液検査などが必要と考えられる。それら検査にて異常が指摘されない場合には経過観察し、不妊が続く場合には再度不妊に対する精査を行う必要がある旨もつたえられるべきかと考えられる。

今回術前に median raphe cyst もしくは増大傾向を示す血管腫と術前に診断した陰囊内血管腫の1例を経験した。この症例は本邦44例目にあたりと考えられる。

結 語

術前 median raphe cyst もしくは増大傾向を示す血管腫と診断され、術後の病理組織学的検査にて hemangioma と診断された1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Ray B and Clark SS: Hemangioma of scrotum. *Urology* **8**: 502-505, 1976
- 2) Alter GJ, Trengove-Jones G and Horton CE Jr: Hemangioma of penis and scrotum. *Urology* **42**: 205-208, 1993
- 3) Gibson TE: Hemangioma of the scrotum. *Urol Cutan Rev* **41**: 843-845, 1937
- 4) 岩崎孝史: 陰囊血腫を起こした陰囊内血管腫の1例。臨床皮膚泌尿器科 **12**: 261-263, 1958
- 5) Konya E, Uejima S, Ohnishi N, et al.: Venous hemangioma of the scrotum: a case report. *Hinyokika Kiyo* **46**: 731-733, 2000
- 6) Kolligian ME, Kogan SJ and Beneck Debra: Intrascrotal hemangioendothelioma in infancy. *Urology* **50**: 456-458, 1997
- 7) Ferrer FA and McKenna PH: Cavernous hemangioma of the scrotum: a rare benign genital tumor of childhood. *J Urol* **153**: 1262-1264, 1995
- 8) Awakura Y, Fukuizawa S, Fukuyama T, et al.: Cavernous hemangioma of the scrotum: a case report. *Hinyokika Kiyo* **44**: 751-753, 1998
- 9) Huang A, Palmer LS and Levitt SB: Epidermoid cyst of the scrotum extending into the true pelvis.

- Urology **54**: 561, 1999
- 10) Little JS Jr, Keating MA and Rink RC: Medain raphe cysts of the genitalia. J Urol **148**: 1872-1873, 1992
 - 11) 日江井鉄彦, 杉山寿一, 加藤範夫, ほか : 陰嚢血管腫の1例. 泌尿紀要 **27** : 111-114, 1981
 - 12) Gotoh M, Mitsuya H, Sugiyama T, et al. . Giant scrotal hemangioma with azoospermia. Urology **22**: 637-639, 1983

(Received on October 1, 2001)
(Accepted on April 15, 2002)