

成人に発生した陰嚢内リンパ管腫の1例

丸山 琢雄¹, 山田 祐介¹, 上田 康生¹, 鈴木 透¹
 樋口 喜英¹, 近藤 宣幸¹, 野島 道生¹, 山本 新吾¹
 造住 誠孝², 廣田 誠一², 大西 洋子³

¹兵庫医科大学泌尿器科, ²同病院病理部, ³樋口医院

A CASE OF LYMPHANGIOMA OF THE INTRASCROTUM IN AN ADULT

Takuo MARUYAMA¹, Yusuke YAMADA¹, Yasuo UEDA¹, Toru SUZUKI¹,
 Yoshihide HIGUCHI¹, Nobuyuki KONDOH¹, Michio NOJIMA¹, Shingo YAMAMOTO¹,
 Masataka ZOZUMI², Seiichi HIROTA² and Yoko OHNISHI³

¹The Department of Urology, Hyogo College of Medicine

²The Department of Surgical Pathology, Hyogo College of Medicine

³The Higuchi Clinic

We reported a rare case of intrascrotal lymphangioma in an adult. A 31-year-old man visited a urological clinic with a chief complaint of left scrotal swelling since a few days ago, and was pointed out to have a left intrascrotal cystic mass. The patient was sent to our hospital for further examination in 23 April 2008. The left scrotal mass was palpated elastic hard below the left testis and its surface was irregular. Light transillumination test showed positive. Ultrasonography revealed a cystic mass 7.0 × 4.4 × 4.5 cm with multiseptate accumulation at the lower pole of the left testis. Magnetic resonance imaging showed low intensity by T1WI and high intensity by T2WI, suggesting a protein-rich component. We suspected left intrascrotal lymphangioma and extirpated the scrotal mass under lumbar anesthesia. Pathological examination demonstrated lymphangioma. The patient had no evidence of recurrence after 1 year.

(Hinyokika Kiji 56 : 457-461, 2010)

Key words : Scrotal lymphangioma, Adult

緒 言

リンパ管腫は、比較的稀な疾患でリンパ系が発生の過程において生じた組織奇形と考えられている。なかでも陰嚢内リンパ管腫は、小児において若干の報告例が見られるが成人には非常に少ない。今回われわれは、成人に発症した1例を経験したので報告する。

症 例

患者：31歳，男性

主訴：左陰嚢腫大

既往歴：うつ病にて神経科通院中

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：生来陰嚢の外傷・手術歴は認めていない。

数日前からの左陰嚢の無痛性腫大に気づき近医受診し、左陰嚢内の腫瘤を指摘され精査目的に2008年4月23日当科に紹介された。初診時、陰嚢内下方に精巣とは異なる表面不整で弾性硬の腫瘤を触知した。なお精巣・精巣上体は触診上正常であった。陰嚢超音波検査では、陰嚢内に左精巣下方に接する内部隔壁構造を持つ7.0 × 4.4 × 4.5 cmの嚢胞状腫瘤を認めた (Fig. 1A)。精巣・精巣は明瞭に区別されたが、精巣上体

は、嚢胞状腫瘤に隠れ不明であった。透光試験にて軽度の透光性を認めたが、触診ならびに超音波検査上の所見から典型的な精液瘤または陰嚢水腫とは異なっていた。MRI検査にて、陰嚢内に多房性の嚢胞状腫瘤が存在し内容液はT1WI: low intensity, T2WI: high intensityを呈し、蛋白成分を含んだ漿液性の液体成分の貯留が考えられた。超音波検査の所見と同様に嚢胞状腫瘤内に充実成分は見られず、精巣に異常は認めなかった。腫瘤の内部隔壁は、T1WIにて淡く造影されていた (Fig. 1B)。精液瘤、血管腫なども否定できなかったが、MRI検査所見などから左陰嚢リンパ管腫がもっとも疑われ手術目的に入院となった。

入院時現症：身長 175 cm, 体重 85 kg, 体格栄養良好で軽度肥満, 胸腹部異常なし, 触診では表在リンパ節や精索に異常は認めなかった。

血液検査では、CRP 0.1 mg/dl と正常, γ -GTP 192 U/l, RBC $553 \times 10^4/\mu\text{l}$ の軽度上昇を認めた以外、末梢血液検査、生化学検査、尿検査にて異常値を認めず。腫瘍マーカーは、AFP 2.3 ng/ml (<10), HCG $-\beta < 0.1 \text{ ng/ml}$, CA19-9 2.6 U/ml (<37), CA125 4.2 U/ml (<35) とすべて正常値であった。

2008年5月16日腰椎麻酔下に腫瘤摘出術を施行し

精巣

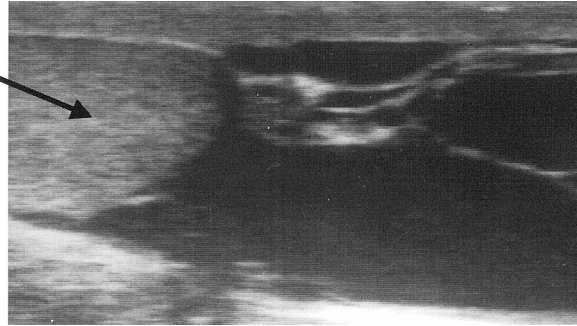
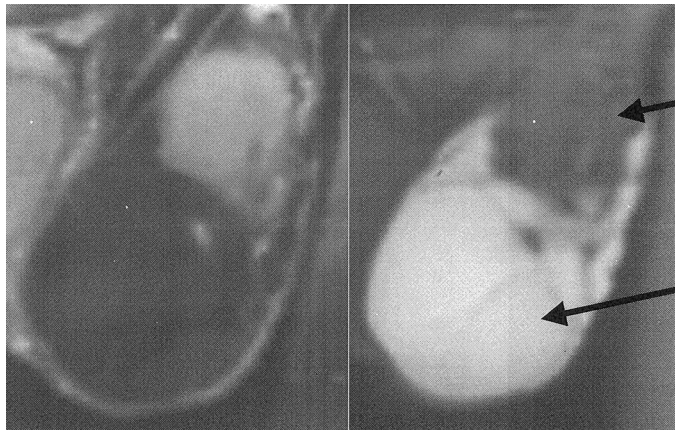


Fig. 1A. Ultrasonography revealed multiple cystic areas in the lower pole of the left testis with multiseptate accumulations in the by $7.0 \times 4.4 \times 4.5$ cm of hypo-echoic, mostly anechoic mass generally.



精巣

陰嚢内腫瘍

Fig. 1B. MRI showed a left intrascrotal cystic with a low intensity (sagittal T1-weighted image), but T2-weighted image MRI showed a very high intensity mass.

た。左陰嚢前面下方に切開を入れると、精筋膜に癒着する総鞘膜に覆われた嚢胞性腫瘍を認めた。周囲筋膜を剥離し陰嚢内容を脱転すると、左精巣下極に接する長径 7.0 cm 大の嚢胞状腫瘍は、精巣ならびに精巣上体との癒着は軽度で容易に剥離でき、精巣上体尾部から嚢胞状腫瘍に延びる細い血管が見られた。周囲組織との癒着を剥離し、最後に精巣上体尾部から延びる細い血管を結紮し嚢胞状腫瘍を摘出した。摘出重量 35 g であった (Fig. 2)。摘出後、嚢胞状腫瘍を穿刺すると

無色透明の液体成分がえられ細胞診は class II であった。

病理組織像：HE 染色にて内腔が平坦な上皮で被覆される多房性の嚢胞状病変を認め (Fig. 3A)、D2-40 免疫染色では、上皮成分が淡く描出され (Fig. 3B) リンパ管腫と考えられた。現在、術後 1 年経過するが明らかな再発は認めない。

リンパ管腫



左精巣

Fig. 2. During the operation, macroscopic findings showed multiple cystic areas in the lower pole of the left testis with multiseptate accumulation in an area 7.0 cm in diameter.

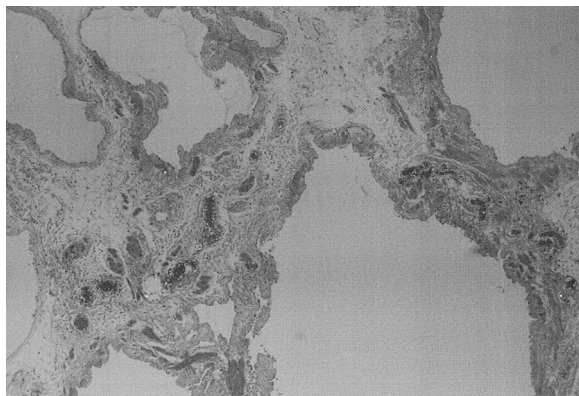


Fig. 3A. Microscopic examination revealed multilocular cystic lesion covered with squamous epithelium inside the cavity (H and E, ×400).

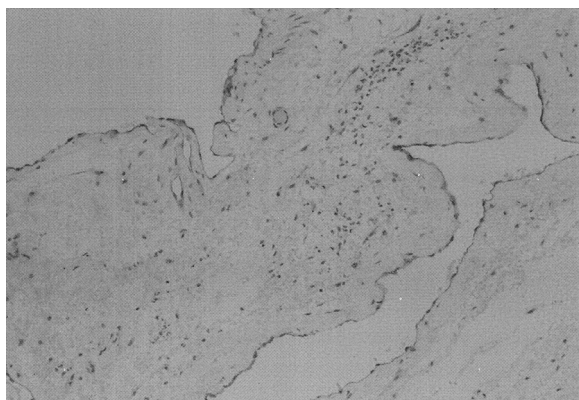


Fig. 3B. The epithelial components showed light staining for D2-40 by immunohistochemical microscopic examination.

考 察

リンパ管腫は比較的稀な疾患で発生頻度は非上皮性腫瘍の0.1～6%ときわめて低く、好発年齢としては、生下時ないし乳幼児に発見されることが多く、さらにその後は思春期まで見られる¹⁾。リンパ管腫は、リンパ管の過誤種でありリンパ管系の先天的奇形によって生じる良性の腫瘍²⁾とされ、リンパ管腔の拡張の程度によって、1) 嚢胞状リンパ管腫、2) 海綿状リンパ管腫、3) 単純性リンパ管腫の3群に分類されている。嚢胞状リンパ管腫は、頭頸部(75%)や腋窩(20%)に、海綿状リンパ管腫は舌・胸郭・四肢・後腹膜腔などに好発する。しかし陰囊内に発生するリンパ管腫は非常に稀である^{3,4)}。発育形態には多様性があり、その多くは浸潤性で周囲臓器との明確な境界を有しないため重要な神経・血管は腫瘍に圧排されずその内部に取り込まれることも多い⁴⁾。

一方、成人に見られるリンパ管腫は、後腹膜腔・消化管などに多いが、これらはリンパ管拡張による後天性と考えられている¹⁾。中条らの報告⁵⁾では、単一施

Table 1. リンパ管腫(精索・陰囊)本邦報告30例

1) 小児 (胎児期～15歳) 20例 (混合型 3 例を含む)						
部位	右	6	左	9	両側	1 不明 4
圧痛	あり	5	なし	8	不明	7
治療	摘除術 13 (摘除術 9, 穿刺 + 摘除術 4)					
	高位精巣摘除術 2					
	OK-432 注入療法 (単独, その他) 2					
	その他・不明 4					
2) 成人 (16歳～) 10例* (混合型 4 例を含む)						
部位	右	4	左	3*	不明	3
圧痛	あり	2	なし	8*		
治療	摘除術 9* 高位精巣摘除術 1					

1966-2008年 * 自験例を含む混合型: 血管腫・リンパ管腫

設での全リンパ管腫集計273例中、鼠径部とその周辺に発症した症例は4例(1.5%)、Grossらの報告⁶⁾では122例中認めず、広瀬らの報告⁷⁾でも88例中1例(1.0%)と、この部位の報告例は非常に少ない。陰囊内に発生するリンパ管腫は、他のリンパ管腫同様、大部分は先天性であるが稀に後天性の場合もあり^{8,9)}、その多くはゆっくりと増殖する無痛性の腫瘍である。陰囊内で発生し後腹膜、会陰部、腹壁へと拡大すると、周辺臓器への圧迫症状、度重なる嚢胞内の出血や感染に伴う急激な腫脹、疼痛などをおこすこともある^{8,10,11)}。本症例の場合、陰囊という発生部位から考えると後天性よりは先天性が考えられるが、経過からはどちらともいえず、確定は困難である。

陰囊内リンパ管腫の本邦報告例は1966年宮川ら¹²⁾が、陰囊・血管リンパ管混合型として始めて報告して以来、調べた限りにおいて自験例を含め30例(混合型7例を含む)が、報告¹²⁻²¹⁾されている。この内15歳以下の小児例は20例²¹⁾、16歳以上は10例で小児例が2/3を占めている。小児20例の内訳は、右6例・左9例・両側1例・不明4例で平均年齢は5.4歳(生下時～15歳)であった。成人10例では右4例・左3例・不明3例で、平均年齢は34.4歳(18～63)であった。小児例ではやや左側に多いが、成人例では左右差は認めなかった。30例中明らかな精巣由来は1例、白膜由来は1例、精索由来は2例であった。

成人で陰囊内の無痛性精巣外腫瘍(嚢胞状)を認めた場合、ほとんどの場合が良性であると報告されているが⁸⁾、1) 陰囊水腫、2) 精索静脈瘤、3) 精液瘤、4) 陰囊内・精巣悪性中皮腫、5) 血管腫、6) 類表皮嚢胞、7) 脂肪腫などとの鑑別が必要になる^{22,23)}。リンパ管腫の診断としては超音波とMRIの有用性が報告されている。超音波は、病変の発生部位、範囲の特定、充実性か嚢胞性かの鑑別などに有用である⁸⁾。特徴的な所見は多房性、隔壁を有する嚢胞性の腫瘍とされている²⁴⁾。また陰囊内の病巣はより広大で潜在的

なりリンパ管奇形の可能性があるため、鼠径部・会陰部・骨盤部を検査することも重要とされる²⁵⁾。またMRIでは、周囲組織や筋肉組織との境界が明瞭に描出されるため、嚢胞性病巣と周囲組織との関係を精査するのに優れているとの報告もある^{9,11,26)}。嚢胞状リンパ管腫は、貯留リンパ液の成分により、MRI T1 強調画像にて脂肪より低信号、T2 強調画像では脂肪よりきわめて高信号に描出され、周囲脂肪組織・筋肉組織との境界が鮮明に描出されるのが特徴である^{11,27)}。

リンパ管腫の治療は、1) 外科的切除、2) 硬化療法: OK-432 (ピシバニール)、アルコール、プレオマイシンなどの注入療法などが行われ^{10,21)}、中でも小児リンパ管腫 (頸部、前胸部、腋窩など) の硬化療法 (OK-432) は、嚢胞状リンパ管腫で、83~100%有効と報告されている²⁸⁾。小児陰嚢内リンパ管腫20例中13例に摘除術 (穿刺+摘除術4例を含む)、2例に高位精巣摘除術 (1例は精索由来) が施行され、OK-432 注入療法が2例に施行されていた。成人例は10例中9例に摘除術が施行され、残りの精索由来である1例に高位精巣摘除術が施行されていた。しかし、リンパ管腫は自然退縮することは稀⁹⁾であり、穿刺あるいは嚢胞切開のみを行った症例では外科的手術に比較し高い再発率が報告されているため²⁹⁾、根治的な外科的切除が望まれる。一方、良性にもかかわらず浸潤性であることが、時に外科的摘出を困難している。集計例においても穿刺あるいは嚢胞切開を施行した小児7症例は、いずれも再発し、手術療法を追加している。また穿刺しても多房性嚢胞のことが多く、十分吸引することは困難であると思われる。その他プレオマイシン、OK-432 による硬化療法が報告されているが、リンパ管腫摘除術が再発を認めず治療の第一選択として最も適している^{2,29)}。完全切除できた症例では、再発の報告はなく自験例でも手術後1年を経過したが再発を認めていない。

結 語

成人男性に発生した陰嚢内リンパ管腫の1例を経験したので文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、第208回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) 下田 忠和: リンパ管の腫瘍および腫瘍状病変。飯島宗一, 他編。第20巻 軟部腫瘍。現代病理学大系: 231-40, 中山書店, 東京, 1992
- 2) Vukicevic J, Milobratovic D, Vukadinovic V, et al.: Lymphangioma scroti. *Pediatric Dermatol* **24**: 654-656, 2007
- 3) Singh S, Baboo ML and Pathak IC: Cystic lymphangioma in children: report of 32 cases including lesions at rare sites. *Surgery* **69**: 947-951, 1971
- 4) 青柳 優, 太田伸男: 嚢胞状リンパ管腫。JOHNS **21**: 1393-1397, 2005
- 5) 中条俊夫, 佐伯守洋, 小方 卓, ほか: 嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績—273例の分析に基づいた治療方針—。小児外科 **16**: 931-938, 1984
- 6) Gross RE: The Surgery of Infancy and Childhood WB Saunders, Philadelphia, 1953
- 7) 広瀬弘明, 岡部郁夫, 森田 健, ほか: 小児リンパ管腫88例の検討。日臨外会誌 **48**: 1833-1839, 1987
- 8) Weidman ER, Cendron M, Schned AR, et al.: Scrotal lymphangioma: an common cause for a scrotal mass. *J Ultrasound Med* **21**: 669-672, 2002
- 9) Hamada Y, Yagi K, Tanano A, et al.: Cystic lymphangioma of the scrotum. *Pediatr Surg Int* **13**: 442-444, 1998
- 10) 広川慎一郎, 増子 洋, 坂本 隆, ほか: 小児リンパ管腫症例の検討。小児がん **36**: 563-566, 1999
- 11) 倉持 朗: リンパ管腫の MRI 診断。埼玉医大誌 **23**: 47-60, 1996
- 12) 宮川光生, 永野俊介, 園田孝夫: 陰嚢皮下組織より発生した血管・リンパ管混合種の1例。泌尿紀要 **12**: 1129-1132, 1966
- 13) 大森正志, 布川朋也, 平石攻治, ほか: 陰嚢内リンパ管腫の1例。高松病誌 **17**: 34-37, 2001
- 14) 小泉修一, 林田英資, 濱口晃一, ほか: 陰嚢内リンパ管腫・血管腫混合型の1例。泌尿紀要 **43**: 307-309, 1997
- 15) 竹山政美, 高 栄哲, 近藤宣幸, ほか: 陰嚢内リンパ管腫の1例。日泌尿会誌 **79**: 1258-1260, 1988
- 16) 香川 征, 塩津智之, 河野 明, ほか: 陰嚢内リンパ管腫の1例。臨泌 **38**: 177-179, 1984
- 17) 細谷吉克, 曾 振強, 金子克美, ほか: 陰茎根部に皮下血腫様病変を繰り返した小児リンパ管腫の1例。泌尿器外科 **6**: 41-42, 1993
- 18) 泉 武寛, 大前博志, 原 信二, ほか: 陰嚢内および陰茎の血管腫・リンパ管腫混合型の1例。泌尿紀要 **31**: 159-164, 1985
- 19) 伊藤康久, 藤本佳則, 徳山宏基, ほか: 陰嚢内の血管腫・リンパ管腫混合型の1例。泌尿紀要 **29**: 447-450, 1983
- 20) 江尻 進, 川口正一, 松原藤継: 辜丸周囲副腎遺残を伴った陰嚢内血管腫・リンパ管腫の1例。泌尿紀要 **22**: 515-519, 1976
- 21) 福井浩二, 土井 裕, 数元秀典, ほか: 小児に見られた陰嚢内リンパ管腫の1例。日小児泌会誌 **15**: 91, 2006
- 22) Sheu JY, Chung HJ, Chen KK, et al.: Lymphangioma of male exogenous organs. *J Chin Med Assoc* **67**: 204-206, 2004

- 23) Sawada K, Inoue K, Ishihawa T, et al. : Multicystic malignant mesothelioma of the tunica vaginalis with an unusually indolent clinical course. 泌尿紀要 **50** : 511-513, 2004
- 24) Hurwitz RS, Shapiro E, Hulbert WC, et al. : Scrotal cystic lymphangioma : the misdiagnosed scrotal mass. J Urol **158** : 1182-1185, 1997
- 25) Browse NL, Whimster I, Stewart G, et al. : Surgical management 'lymphangioma circumscriptum'. Br J Surg **73** : 585-588, 1986
- 26) Irvine AD, Sweeney L, Corbett JR, et al. : Lymphangioma circumscriptum associated with paravesical retroperitoneal lymphangioma. Br J Dermatol **134** : 1135-1137, 1996
- 27) Siegel MJ, Glazer HS, St Amour TE, et al. : Lymphangiomas in children : MR imaging. Radiology **170** : 467-470, 1989
- 28) 岡 陽一郎, 浅部浩史, 白日高歩, ほか : 小児リンパ管腫の治療経験—硬化療法を中心に—. 臨小児医 **54** : 59-63, 2006
- 29) Alqahtani A, Nguyen LT, Flageole H, et al. : 25 years, experience with lymphangiomas in children. J Pediatr Surg **34** : 1164-1168, 1999

(Received on December 14, 2009)

(Accepted on March 22, 2010)