

陰核肥大をきたした陰核包皮血管腫の1例

長門総合病院泌尿器科 (医長: 石津和彦)

石 津 和 彦

山口大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 酒徳治三郎教授)

中村 金弘, 馬場 良和, 瀧原 博史, 酒徳治三郎

山口大学医学部第2病理学教室 (主任: 高橋 学教授)

田 中 一 成

CLITORAL ENLARGEMENT CAUSED BY PREPUICIAL HEMANGIOMA: A CASE REPORT

Kazuhiko Ishizu

From the Department of Urology, Nagato General Hospital

Kanehiro Nakamura, Yoshikazu Baba,

Hiroshi Takihara and Jisaburo Sakatoku

From the Department of Urology, Yamaguchi University School of Medicine

Kazunari Tanaka

From the Second Department of Pathology, Yamaguchi University School of Medicine

A 4-year-old girl visited with the chief complaint of clitoral enlargement which was first pointed out when she was one year old. She has received excision of the femoral tumor, which was histologically an arteriovenous hemangioma, at 4 years old. The prepuce was darkly purplish and the clitoral neck was enlarged without enlargement of the clitoral glands. The external genitalia otherwise were normal and there were no virilizing signs. The mass was excised at the preoperative diagnosis of prepuicial hemangioma. The mass was enclosed in the prepuce and adherent to its skin and there was no enlargement of the clitoris itself. The histopathological diagnosis was arteriovenous hemangioma.

(Acta Urol. Jpn. 37: 1563-1565, 1991)

Key words: Clitoral enlargement, Hemangioma

緒 言

陰核肥大をきたす疾患として先天性副腎皮質過形成¹⁾がよく知られている。しかし、先天性副腎皮質過形成以外に神経線維腫²⁻⁵⁾、脂肪腫²⁾、血管内皮腫²⁾などの腫瘍性病変により陰核肥大をきたした症例もまれに報告されている。しかし、多くはレックリングハウゼン病に伴う神経線維腫によるもの²⁻⁵⁾であり、血管系腫瘍によるものはわれわれが検索したかぎりでは1例²⁾が報告されているにすぎない。今回、われわれは陰核肥大をきたした陰核包皮血管腫の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例: 4歳, 女児

主訴: 陰核肥大

家族歴・既往歴: 特記事項なし

現病歴: 1歳時に近医にて陰核肥大を指摘され経過を観察していた。1990年3月29日に左大腿部腫瘍(切除標本の組織検査にて浅在型動静脈型血管腫の診断)を当院外科にて切除した際にも陰核肥大を指摘され、同年4月2日当科紹介となった。

現症: 頭頸部、胸部および腹部に異常をみとめなかった。左大腿の手術創以外に四肢に異常をみとめなかった。表在リンパ節は触知しえなかった。陰核亀頭部

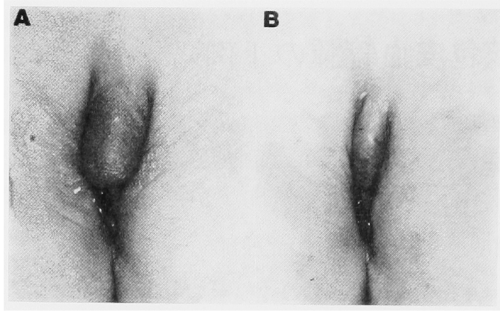


Fig. 1. Appearance of the clitoris pre-operatively (A) and 3 months after the operation (B).

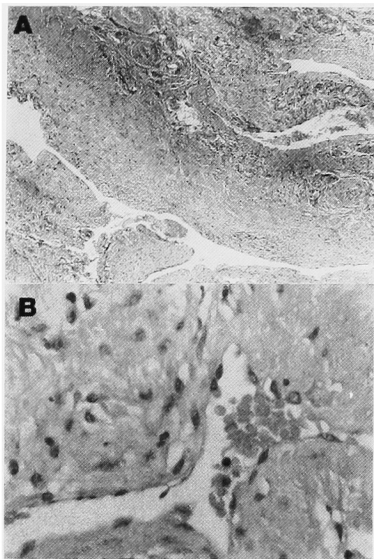


Fig. 2. Histological examination showed arterio-venous hemangioma. Low magnification (A) and high magnification (B)

は正常大であったが、陰核包皮は暗紫色を呈し、陰核茎部は直径 1 cm、長さ 2.5 cm に肥大していた (Fig. 1A)。同部に拍動および圧痛はみとめられなかった。陰核以外の外性器に異常はみとめられず、男性化兆候もみとめられなかった。

検査成績：末梢血一般、血液生化学、血清電解質および尿検査にて異常をみとめなかった。

以上の所見および大腿部腫瘍の組織検査の結果から陰核包皮に発生した浅在型動静脈型血管腫の疑いにて同年 5 月 17 日に腫瘍の切除を行なった。

手術：全身麻酔下碎石位にて、包皮を冠状溝に沿った孤状切開および背面切開を加え包皮を剝離した。腫瘍は包皮に包まれ包皮に癒着し本来の陰核を覆うよう

にみとめられたが、本来の陰核には肥大はみとめられなかった。切除摘出した腫瘍は暗紫色で、直径 0.7 cm、長さ 2.5 cm であった。

組織学的所見 (Fig. 2)：多数の不規則な形で拡張した血管腔がみられ、壁が厚く明瞭な平滑筋線維束を伴った血管と壁が薄く平滑筋線維に乏しい血管がみとめられた。動静脈吻合はみとめられなかった。

以上の所見から以前に切除された大腿部腫瘍と同様に浅在型動静脈型血管腫と診断した。

術後経過：術後経過良好で、術後 3 カ月を経た現在再発をみていない (Fig. 1B)。

考 察

陰核肥大をきたす疾患としてホルモン異常による先天性副腎皮質過形成¹⁾がよく知られている。しかし、先天性副腎皮質過形成以外に神経線維腫²⁻⁵⁾、脂肪腫²⁾、血管内皮腫²⁾などの腫瘍性病変により陰核肥大をきたした症例も稀に報告されており、pseudo-pseudo-hermaphroditism と呼んでいる文献⁶⁾も見られる。そのため、陰核肥大を診る場合に肥大が先天性副腎皮質過形成によるものか、腫瘍性病変によるものかを鑑別する必要がある。しかし、一般的に先天性副腎皮質過形成による陰核肥大は陰核龟头および陰核茎部を含む陰核全体の肥大であるのに対して、腫瘍性病変による陰核肥大は部分的な肥大である点から両者を鑑別することは容易に可能であると考えられる。加えて、先天性副腎皮質過形成では陰裂の融合や外尿道口の位置異常などの陰核肥大以外の外性器異常¹⁾や全身的な男性化兆候を伴うことがある点も両者の鑑別に役立つと考えられる²⁾。自験例は陰核肥大が陰核茎部に限局し、陰核以外の外性器異常および男性化兆候がみとめられなかった点から先天性副腎皮質過形成によるものとの鑑別が容易に可能であり、包皮が暗紫色を呈したことおよび大腿部腫瘍の組織検査の結果から陰核肥大は浅在型動静脈型血管腫によるものであることは術前に推定し得た。

動静脈型血管腫は動静脈吻合を伴い深部に存在する深部型と動静脈吻合を伴わずに浅部に存在する浅在型に分類される⁶⁾。浅在型動静脈型血管腫は真皮あるいは粘膜下の血管叢の多中心性過誤腫であり、自然消失することはないが緩徐に成長していくが、一般的には単純切除に治療すると考えられている⁶⁾。自験例では術前に浅在型動静脈型血管腫であることが推定されたため、美容的目的から単純切除を行った。

結 語

陰核肥大をきたした陰核包皮血管腫の1例を報告し, 若干の文献的考察を加えた.

文 献

- 1) Prader A: Der Genitalbefunde beim Pseudohermaphroditismus femininus des kongenitalen adrenogenitalen Syndroms. *Helv Paediat Acta* **9**: 231-248, 1954
- 2) Haddad HH and Jones HW: Clitoral enlargement simulating pseudohermaphroditism. *J Dis Child* **99**: 282-287, 1960
- 3) Juif JG, Kurtz F, Bonardi JM, et al.: Maladie de Recklinghausen et pseudo-ambigu te sexuelle. *Arch Fr Pediatr* **40**: 487-489, 1983
- 4) Haraoka M, Naito S and Kumazawa J: Clitoral involvement by neurofibromatosis: A case report and review of the literature. *J Urol* **139**: 95-96, 1988
- 5) 桜井 守, 押阪裕之, 堺 薫: 外性器異常を伴った神経線維腫症の1例. *小児科診療* **52**: 2680-2584, 1989
- 6) Enzinger FM and Weiss SW: Benign tumors and tumorlike lesions of blood vessels. In: *Soft Tissue Tumors*. Edited by Enzinger FM and Weiss SW, 2nd ed., pp. 489-532, The CV Mosby Co, St Lous, 1988

(Received on November 28, 1990)
(Accepted on January 22, 1991)