

副睪丸 Papillary Cystoadenoma の1例

神戸大学医学部泌尿器科学教室（主任：石神襄次教授）

中野 康治・藤井 昭男・守殿 貞夫・石神 襄次

神戸大学医学部第2病理学教室

宗 野 和 彦

A CASE OF PAPILLARY CYSTOADENOMA OF EPIDIDYMISS

Yasuharu NAKANO, Akio FUJII, Sadao KAMIDONO and Joji ISHIGAMI

From the Department of Urology, School of Medicine, Kobe University

(Director: Prof. J. Ishigami, M. D.)

Kazuhiko SOONO

From the Department of the Second Division of Pathology, School of Medicine, Kobe University

A case of papillary cystoadenoma of the epididymis is reported. On August 14, 1981, a 34-year-old man presented with the chief complaint of the wish to father a baby. A thumb-sized tumor was palpable as a firm and non-tender mass at the left epididymis-head. Left orchietomy was performed on September 10. Histopathologically, the diagnosis was papillary cystoadenoma of the epididymis.

We discuss this case and review the cases reported in Japan.

Key words: Epididymial tumor, Papillary cystoadenoma

緒 言

副睪丸の原発性腫瘍は泌尿生殖器腫瘍の中でもまれな疾患であるが、そのなかでもきわめてまれな Papillary cystoadenoma の1例を最近経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：34歳 男子

初診：1981年8月14日

主訴：嫡子希望

既往歴：12歳で虫垂切除術

家族歴：母が肺結核

現病歴：結婚後10年になるも嫡子が出来ない。また妻の妊娠歴もない。性欲・勃起・射精は正常である。約10年前より右陰囊内容が小さく硬いことに気付いていたが放置していた。近医を受診し、当科受診をすすめられて、1981年8月14日当科不妊外来を受診した。

現症：栄養・体格中程度、女性化乳房なし。腹部にも異常を認めない。陰茎・前立腺は正常である。右睪

丸は萎縮し、大きさは、 $0.9 \times 1.2 \times 1.0$ cm でソケイ管近くに存在する。右副睪丸は触診上著変を認めない。

左睪丸も萎縮しており $0.9 \times 1.0 \times 1.0$ cm の大きさで、左副睪丸は触診上頭部から尾部にかけて母指頭大の硬い無痛性腫瘍を触知する。この腫瘍と左睪丸との境界は明瞭ではなかった。精管は両側ともに正常であった。

精液検査：精液量は約 1.5 cc、粘稠度はサラサラ、精子を認めない。

血液生化学的検査：肝機能・腎機能・電解質・一般検血は正常、 α -fetoprotein 1.4 ng/ml, β -HCG 0.09 ng/ml と正常であった。

内分泌学的検査：FSH 50.1 mIV/ml, LH 53.0 mIV/ml, testosterone 5.0 ng/ml.

尿検査：蛋白(－), 糖(－), 沈査正常

以上の所見より、無精子症および副睪丸結核の疑いにて、1981年9月10日外来、局所麻酔下に精囊腺造影・睪丸生検・試験切開術を施行した。

手術に際し、左陰囊を切開し睪丸・精索を露出すると、副睪丸頭部より睪丸にかけて、直径約2 cm の有茎性の乳頭状腫瘍が認められた (Fig. 1)。副睪丸よ

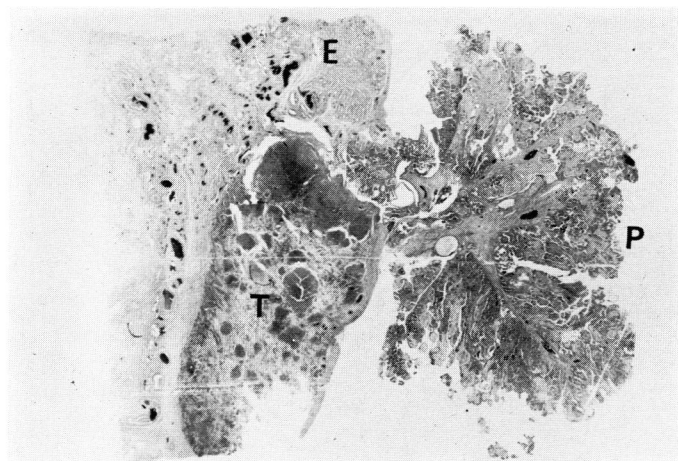


Fig. 1. Gross photograph of longitudinal section of the tumor. Efferent ducts (E), testis (T), and papillary tumor (P) (H & E, x 3)

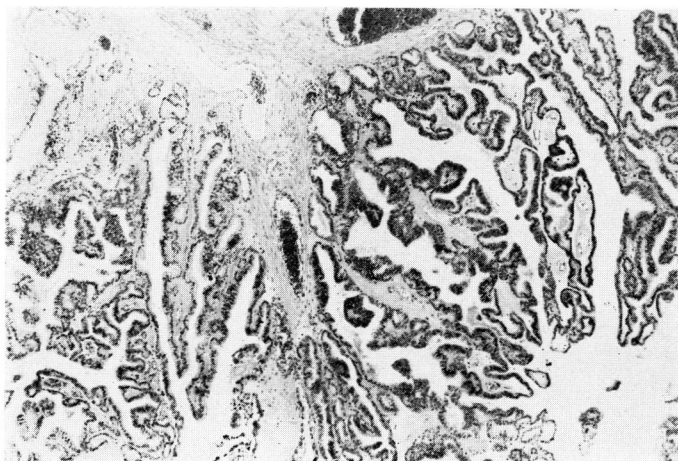


Fig. 2. The tumor is composed of delicate connective tissue papillae (H & E, x 40)



Fig. 3. The cyst is filled with colloidal material (H & E, x 100)

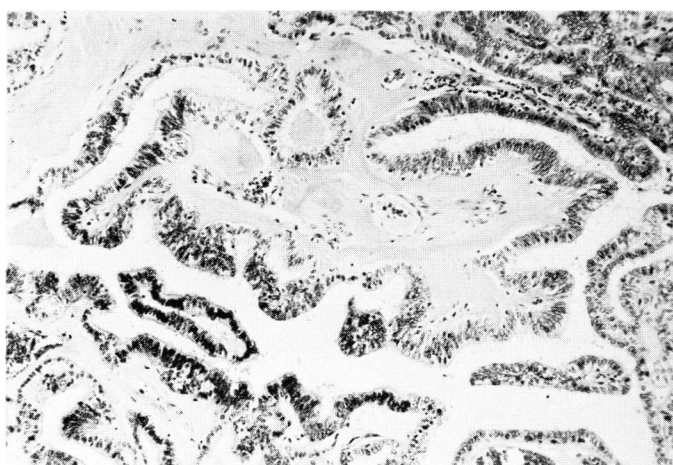


Fig. 4. In many places the connective tissue of the tumor is hyalinized. Papillae are lined by ciliated and tall columnar epithelium (H & E, $\times 200$)

Table 1. 副睪丸腫瘍の組織分類 (本邦報告 157 例中)

良 性 腫 瘍	123例 (78.3%)	悪 性 腫 瘍	34例 (21.7%)
Adenomatoid Tumor	62	肉 腫	16
平 滑 筋 腫	39	癌	13
papillary cystoadenoma	5	Seminoma	3
そ の 他	17	そ の 他	2

り発生した腫瘍か、睪丸から発生したものか肉眼的に判別困難であり、かつ悪性腫瘍が疑われたため左除睪術を施行した。

病理組織学的所見：腫瘍は萎縮した睪丸に接するように存在し、副睪丸頭部と思われる部位から乳頭状に外方へ向かって約 $1.8 \times 1.2 \times 1$ cm の大きさに増殖していた (Fig. 1)。

組織像では、腫瘍は毛細血管を含む線維性間質をともしない乳頭状に増殖しており (Fig. 2)、腫瘍の基部の一部では colloid を含む cystic formation を認めたが、全体的には嚢胞形成に乏しかった (Fig. 3)。上皮成分は線毛を持った単層および重層する円柱上皮より成り、核は紡錘形から楕円形で異型に乏しく、間質には硝子化とともに部分的に石灰化も認めた (Fig. 4)。一部で乳頭状増殖強く、また back to back の増生も認めたが良性と考えられた。

以上の所見より左副睪丸の papillary cystadenoma と診断された。

また精巣は萎縮しており、硝子化した精細管および

Leydig 細胞の増生より成る多数の大小さまざまな結節が散在性に認められ、精子形成能は完全に欠如していた。

考 察

副睪丸に原発する腫瘍はまれな疾患で、本邦では薬師寺ら¹⁾は95例、広野ら²⁾は128例、小原ら³⁾は153例の原発性副睪丸腫瘍を集計報告している。われわれは小原らの報告に未集計の症例⁴⁻⁶⁾と自験例を加えた157例を集計した (Table 1)。

著者が集計した副睪丸腫瘍 157 例中その大部分は良性腫瘍 (123例, 78.3%) であり、その中では adenomatoid tumor がもっとも多く62例を占めている。

papillary cystoadenoma は1956年 Sherrick⁷⁾が初めて報告して以来、欧米では20数例⁸⁾、本邦では津田⁹⁾ 大田¹⁰⁾の4例をみるのみで本症例は第5例目と思われる (Table 2)。

本症の発生原基は Mesonephros 由来と考えられ、副睪丸頭部の efferent duct から発生し、それがさま

Table 2. Papillary cystadenoma of epidymis in Japan

No	報告年度	報告者	年齢	部位	主訴	術前診断	術式	大きさ cm	備考
1	1976	津田・ほか	30	両側副睾丸	陰嚢内腫瘍	副睾丸結核	副睾丸頭部切除	右 2×1×1 左 2×2×1	azoospermia
2	1976	津田・ほか	44	両側副睾丸	陰嚢内腫瘍	papillary cystadenoma の疑い	副睾丸頭部切除	右 3×2×1.5 左 ?	1子あり 眼底出血斑 左腎腫瘍の疑い
3	1976	津田・ほか	39	両側副睾丸	陰嚢内腫瘍	papillary cystadenoma の疑い	副睾丸頭部切除	右 2×2×1.5 左 2×2×1.0	azoospermia
4	1978	大田・ほか	22	両側副睾丸 右旁精索部	陰嚢内腫瘍	腫瘍 (良性)	腫瘍摘出	右 1.5×1.5×1.0 左 1.2×1.3×1.0 右精索部 0.6×0.5×0.5	眼底は異常なし
5	1982	自験例	34	左副睾丸	精子希望	副睾丸結核の疑い	左除睾術	左 1.8×1.2×1.0	azoospermia 眼底は異常なし IVP 正常

(No 1～No 3 は同胞発生)

ざまな拡張をきたして cyst を形成するとされている¹¹⁾。また本症は Lindau 氏病を合併する場合が多く¹²⁾、Mostofi¹¹⁾は1種の Hamartoma ではないかとしている。

その発生年齢は、欧米例¹³⁾では16～57歳に、自験例を含めて本邦の5例では22～44歳である。Beccia⁹⁾によると両側発生は約15%であるが、本邦の5例では、自験例を除き両側発生である。

本症はすべて副睾丸頭部に発生するが、本邦の1例¹⁰⁾は右旁精索部に、欧米例^{13,14)}では精索部にも発生がみとめられている。

症状としては、陰嚢内の無痛性腫瘍を主訴とし受診することが多いが、本症例は左陰嚢内腫瘍には気づいておらず、男性不妊を主訴として来院し、触診および試験切開時に腫瘍を認めている。また本邦例5例中3例に無精子症が認められ、両側性に本症が発生すれば閉塞性無精子症の原因となりうる¹⁵⁾。本症例では、両側睾丸は萎縮し、精子形成能も欠如しており、内分泌学的にも hypergonadotropic hypogonadism の状態であるので造精機能不全による絶対性無精子症と考えられる。

特徴的な本症の合併症として Hippel-Lindau 氏病、cerebellar hemangioblastoma がある^{11,16)}。本症が Lindau 氏病の不全型であるという説もあり、本邦例でも1例に Lindau 氏病の疑いをもたれている⁹⁾。本症例においては、家族歴・排泄性腎盂造影・眼底検査等施行したが、現在のところ Lindau 氏病と思われる所見は認めていない。

治療としては副睾丸を含めた腫瘍摘出術が主体を占

めている⁹⁾が、自験例は局所麻酔下にての外来手術であり、肉眼的に原発巣が睾丸か副睾丸か明確に判断できなかったためやむをえず除睾術をおこなった。臨床経過・各種検査成績・慎重な触診所見・さらに術中の迅速標本による病理診断等を取り入れれば腫瘍のみ摘出が可能と思われる。

現在のところ再発および悪性化の報告は内外ともにないが、本症と Lindau 氏病との関連より慎重な経過観察が必要と考える。

結 語

34歳男子にみられた副睾丸 papillary cystadenoma 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97回関西地方会にて発表した。)

文 献

- 1) 薬師寺道則・境 優一・野田進士・山口和彦：副睾丸平滑筋腫の1例。泌尿紀要 19：881～887, 1973
- 2) 広野晴彦・藤岡良彰・石井洋二・川井 博：副睾丸部平滑筋腫の2例。臨泌 30：711～714, 1976
- 3) 小原信夫・三輪 誠・松本哲夫・高瀬通洋・土屋 哲・大井綱郎・外野正己：副睾丸平滑筋腫の1例。泌尿紀要 25：949～955, 1979
- 4) 柿木敏明・長沼弘三郎：陰嚢内良性腫瘍の2例。西日泌尿 41：711～714, 1979
- 5) 早川正道・馬場志郎・中村 宏・河合俊明：副睾

- 丸に認められた線維性偽腫瘍の1例. 臨泌 34 : 1191~1194, 1980
- 6) 杉本俊門・早原信行・森川洋二・前川正信：原発性副睾丸平滑筋腫の1例. 泌尿紀要 27 : 443~449, 1981
- 7) Scherrick JC: Papillary cystoadenoma of the epididymis. Cancer 9 : 403~407, 1956
- 8) Beccia DJ, Krane RJ and Olsson CA: Clinical management of non-testicular intra-scrotal tumors. J Urol 116 : 476~479, 1976
- 9) Tsuda H, Fukushima S, Takahashi M, Hikosaka Y and Hayashi K: Familial bilateral papillary cystoadenoma of the epididymis. Report of three cases in siblings. Cancer 37 : 1831~1839, 1976
- 10) 大田修平・田中啓幹：両側副睾丸および右旁精索部に発生した Papillary cystoadenoma の1例. 西日泌尿 40 : 418~421, 1973
- 11) Mostofi FK and Price EB: Tumor of the Male Genital System. Armed Forces Institute of Pathology. 162~165, Washington. 1973
- 12) Tønning HO, Warren RF and Barrie HJ: Familial hemangioma of the cerebellum. Report of three cases in a family of four. J Neurosurg 9 : 124~132, 1952
- 13) Price EB Jr: Papillary cystoadenoma of the epididymis. Arch Pathol 91 : 456~470, 1971
- 14) Chan YH, Schinella RA and Draper JW: Papillary clear cell cystoadenoma of the epididymis. J Urol 100 : 661~665, 1968
- 15) J Lopez DSM and Bustos-Obregon E: A case of bilateral cystoadenoma of the epididymis causing obstructive azoospermia. Andrologia 13 : 548~550, 1981
- 16) Melmon KL and Rosen SW: Review of the literature and study of a large kindred. Am J Med 36 : 595~617, 1964

(1982年4月23日受付)