

急性陰囊症を呈した IgA 血管炎の 1 例

倉本 朋未, 井口 孝司, 射場 昭典*

新宮市立医療センター泌尿器科

ACUTE SCROTAL SWELLING CAUSED BY IgA VASCULITIS : A CASE REPORT

Tomomi KURAMOTO, Takashi IGUCHI and Akinori IBA

The Department of Urology, Shingu Municipal Medical Center

The patient was a 4-year-old boy. He consulted our hospital's Dermatology Department for diffuse pruritic erythema on his extremities. Toxicoderma was suspected and a topical steroid was prescribed. Nine days later, when the boy was taking a bath, his mother noticed swelling of his scrotum and consulted a local pediatrician. The pediatrician suspected acute scrotal swelling and referred him to our department the same day. Purpura was found on the bilateral scrotum and prepuce; edema was also present. Physical examination revealed mild tenderness of the bilateral scrotum. Purpura was present from the right inguinal region to the ipsilateral femoral region. Color Doppler ultrasonography confirmed the presence of blood flow in both testes, and edematous changes were found on the scrotal skin. On the basis of the clinical course of the skin lesions as well as physical and ultrasonographic findings, the condition was diagnosed as acute scrotal swelling caused by IgA vasculitis. After four days of rest, significant improvement in scrotal and preputial edema as well as in the right inguinal region was observed.

(Hinyokika Kiyo 66 : 369-372, 2020 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_66_10_369)

Key words : Acute scrotum, IgA vasculitis, Allergic purpura, Scrotal swelling

緒 言

IgA 血管炎 (Henoch-Schönlein 紫斑病) は免疫学的反応に関連した全身性の小血管炎である。その症状は多彩であり、代表的な症状は四肢、特に下肢に多発性に生じる点状紫斑である。他の症状として、関節症状 (関節痛、関節腫脹)、消化器症状 (腹痛、嘔吐、血便、下痢など)、腎症状 (尿検査異常、腎炎/ネフローゼ症候群) などもある。また随伴症状として稀に陰囊病変を合併する¹⁻³⁾。今回、急性陰囊症を呈した IgA 血管炎の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 4 歳, 男児

主 訴 : 両側陰囊腫脹, 陰茎腫脹

家族歴 : 特記すべきことなし

既往歴 : 喘息, アトピー性皮膚炎

現病歴 : 当科初診の 9 日前に四肢に痒疹を伴う紅斑が散在し当院皮膚科を受診した (Fig. 1)。中毒疹の可能性があるとのことです。ステロイド外用薬を処方され経過観察となっていた。

入浴時に母が陰囊、陰茎の腫脹に気づき近医小児科を救急受診した。急性陰囊症の疑いで同日当科紹介受診となった。母親によると前医の小児科での診察後か



Fig. 1. Erythema was found on the patient's extremities.

* 現 : りんくう総合医療センター泌尿器科

ら陰嚢部の痛みを訴え出したとのことであった。陰嚢部打撲などの外傷の既往はなかった。

現 症：両側陰嚢皮膚は暗紫色に変色し圧迫で消褪しなかった。両側陰嚢は浮腫状であり、右精巣は触知できたが左精巣は浮腫が強く触知できなかった。両側陰嚢に軽度圧痛を認めたが自発痛は認めなかった。包皮も暗紫色に変色し浮腫状であった。右鼠径部から大腿部にかけて紫斑を認めた (Fig. 2)。

検査所見：血液検査では WBC 10,200/ μ l, CRP 0.33 mg/dl と軽度上昇していたが、ほかに明らかな異常は認めなかった。尿一般定性・沈渣で明らかな異常は認めなかった。

画像所見：超音波検査で両側陰嚢水腫、陰嚢皮膚の浮腫状変化を認めた。カラードップラーエコー検査で精巣の血流を確認した。



Fig. 2. The patient's foreskin was edematous and discolored (dark purple). Purpura was noted from the right inguinal region to the right thigh.



Fig. 3. Four days after the patient's initial visit to our department, the scrotal and preputial edema had improved, and the purpura of the scrotum and prepuce had disappeared. The purpura of the right inguinal region and thigh had also disappeared.

経過：症状、触診、エコー所見から、精巣捻転の可能性は低いと判断した。皮膚病変の経過から IgA 血管炎による急性陰嚢症の可能性が高いと判断し、当院小児科医にコンサルトしたところ自宅安静との指示を得た。翌日再診では陰嚢、包皮の浮腫は改善傾向であったが右大腿部の紫斑は広がっていた。自宅安静を継続し、当科初診から4日後の診察では、陰嚢・包皮の浮腫は改善し紫斑も消失していた。右鼠径部、大腿の紫斑も消失していた (Fig. 3)。

考 察

IgA 血管炎は小児期に頻度の高い全身性血管炎である。好発年齢は3～10歳であり、多数が上気道感染後に発症する。下肢に好発し浸潤が触れる紫斑（血小板減少や凝固系異常を伴わない）、関節症状（関節痛、関節腫脹）、消化器症状（腹痛、嘔吐、血便、下痢など）、腎症状（尿検査異常、腎炎/ネフローゼ症候群）、が4主徴である。IgA 免疫複合体が皮膚血管壁や腎メサンギウムに沈着することにより生じる補体の活性化や好中球の浸潤などが原因といわれている¹⁻³⁾。腎症状は他の症状より遅れて出現するが80%は1カ月以内に出現する。皮膚症状、消化器症状、関節症状の出現順位に一定の傾向はなく、約40%で関節炎や腹痛が紫斑に先行する⁴⁾。

予後不良因子としての明確な基準はないが、2～14%の症例でネフローゼや急性進行性糸球体腎炎に移行し腎不全に至るとされており、血尿、尿蛋白の有無について経過観察が必要である⁵⁾。

IgA 血管炎は、以前は Henoch-Schönlein purpura (HSP) と呼ばれていたが、2012年の Chapel Hill Consensus Conference で IgA 血管炎に名称が変更された⁶⁾。

小児 IgA 血管炎の診断基準として米国リウマチ学会の分類基準があり⁷⁾、4項目（①隆起性の紫斑、②急性の腹部疼痛、③生検組織での小動静脈壁の顆粒球の存在、④年齢が20歳以下）のうち2項目以上を満たせば診断可能である。採血データでは通常、血小板は正常でありプロトロンビン時間などの凝固系も正常である。血漿第13因子活性は約3/4の例で低下している。病初期には血清 IgA が約40～60%の症例で上昇する。血清補体価は正常、ANCA は陰性である²⁾。

IgA 血管炎の陰嚢症状は疼痛や圧痛、疼痛を伴わない腫脹や皮下出血などがある。IgA 血管炎の随伴症状としての陰嚢病変については Allen らが1960年に初めて報告した⁸⁾。

宮里らの報告では IgA 血管炎の随伴症状としての陰嚢病変の頻度は2～38%であり、この幅は陰嚢腫大や陰嚢部痛以外に陰嚢、陰茎などの点状出血や紫斑を含めた例も多く存在するためであろうと考察してい

る⁹⁾。青木らは急性陰囊症で小児救急外来を受診した患者のうち IgA 血管炎の占める割合は 4%であったと報告している¹⁰⁾。IgA 血管炎に伴う陰囊部痛は皮疹出現前に生じることもあり、精巣捻転との鑑別が困難である。診断方法は、視診、触診、超音波検査や造影 MRI などがあるが確定的なものはない。先行する上気道感染の有無や紫斑、腹痛の有無などの問診が重要となる。急性陰囊症では超音波検査は低侵襲でありほぼ全例で施行される。IgA 血管炎の陰囊症状の超音波検査所見として精巣上体の腫大、血流増加、不均一なエコー輝度、周囲組織の肥厚、反応性陰囊水腫が認められる^{11,12)}。

自験例では先行する四肢の紫斑、カラードップラーエコーで両側精巣の血流を確認したことから精巣捻転は否定的であり IgA 血管炎に伴う急性陰囊症と診断し経過観察とした。

Hara らの報告では急性陰囊症を呈した IgA 血管炎の 25 例中 11 例で診断的切開を施行し、精巣捻転症例はなかったと報告している¹³⁾。しかし、IgA 血管炎に合併した精巣や精巣上体垂捻転例の報告もあり¹⁴⁻¹⁶⁾、診察時に捻転の疑いが否定できなければ診断的切開を考慮することも必要である。

1997 年から 2019 年まで自験例を含め急性陰囊症を呈した IgA 血管炎の 22 例^{5,9,13,16-18)}について検討した(抄録を含む Table 1)。発症時の年齢は 2~12 歳で平

均年齢は 5.7 歳であった。患側について、右側 9 例、左側 3 例、両側 10 例(異時性 4 例)であり両側性が多いというわけではない。

陰囊症状とその他の症状との出現時期に一定の関係は認められず、皮膚病変が初発でない症例を 8 例に認めた。いずれかの IgA 血管炎症状が発症した日を第 1 病日として、急性陰囊症を発症した日は最短で第 1 病日、最長で第 30 病日と幅があり、中央値は第 2.5 病日であった。また紫斑消失後に陰囊症状が出現した例もあり¹⁶⁾、IgA 血管炎による急性陰囊症と診断するのが難しい場合もある。

特別な治療はなく、安静を保ち症状に応じて対症療法を行う。軽度の関節痛と腹痛には非ステロイド性抗炎症薬が投与される。中等症から重症の消化器症状、関節痛には副腎皮質ステロイド療法が有効である。腎症の治療は長期大量副腎ステロイド療法を含む各種免疫抑制療法、血漿交換が併用される¹⁾。

外科的に介入した例は 12 例あり、そのうち 1 例で精巣上体垂捻転を認め精巣上体垂摘除を行った¹⁶⁾。精巣捻転例は認めなかった。2 例で精巣捻転は認めなかったが術中所見で精巣壊死と判断し精巣摘除を施行したがいずれも病理所見は血管炎であった¹⁸⁾。本邦 22 例の治療について 6 例で経過観察、6 例でステロイド治療が行われていた(点滴 3 例、内服 3 例)。自験例では安静のみで症状は改善した。IgA 血管炎の多くは一過性で予後は良いとされているが稀に再発する場合がある。22 例中再発例は 2 例であった。

自験例では、紫斑出現と陰囊病変、カラードップラー検査から IgA 血管炎に伴う急性陰囊症と診断し、適切な対処が行えたが、本疾患に対する知識がなければ試験開腹を行っていた可能性もある。小児急性陰囊症を診察する際は本疾患を念頭におき、十分な問診と全身の観察が重要である。

結 語

急性陰囊症を呈した IgA 血管炎の 1 例を経験した。紫斑出現と陰囊病変、カラードップラーエコー検査から IgA 血管炎に伴う急性陰囊症と診断し、適切な対処が行えた。

文 献

- 1) 古川福実, 池田高治, 石黒直子, ほか: 血管炎・血管障害診療ガイドライン 2016 年改訂版. 日皮会誌 127: 299-415, 2017
- 2) 血管炎症候群の診療ガイドライン (2017 年改訂版). 厚生労働省 難治性疾患政策研究事業 難治性血管炎に関する調査研究班: 78-83, 2018
- 3) Kliegman RM, Stanton BF, Geme III JW, et al.: ネルソン小児科学原著第 19 版 (日本語) (監訳者: 衛藤義勝). pp 1012-1014, エルゼビア・ジャパン,

Table 1. Clinical features of 22 cases of acute scrotal swelling caused by IgA vasculitis in Japan

平均年齢	5.7 歳 (2-12)
患側	
右	9
左	3
両側	10 (同時 6, 異時 4)
初発症状	
急性陰囊症のみ	4 (2 例は IgAV の既往あり, 2 例は翌日紫斑出現)
紫斑のみ	8
消化器症状のみ	3
急性陰囊症 + 紫斑	2
急性陰囊症 + 消化器症状	1
紫斑 + 消化器症状 + 関節痛	1
急性陰囊症発症病日 (中央値)	2.5 日 (1-30)
陰囊エコー施行の有無	
有	18 (10 例で捻転否定的, 8 例で捻転疑い)
無	2
治療	
試験開腹	12
経過観察	6
ステロイド治療	6 (内服 3, 点滴 3)

IgAV: IgA vasculitis.

- 東京, 2015
- 4) 循環器病の診断と治療に関するガイドライン (2006-2007年度合同研究版報告). 血管炎症候群の診療ガイドライン. *Circ J* **72**: 1303-1305, 2008
 - 5) 武村政彦, 金子 新, 林 秀樹, ほか: 急性陰囊症を合併した Schönlein-Henoch 紫斑病の 1 例. *西日泌尿* **65**: 626-628, 2003
 - 6) Jennette JC, Falk RJ, Bacon PA, et al.: 2012 Revised International Chapel Hill Consensus Conference Nomenclature of Vasculitides. *Arthritis Rheum* **65**: 1-11, 2013
 - 7) Mills JA, Michel BA, Bloch DA, et al.: The American College Of Rheumatology 1990 Criteria For The Classification Of Henoch-Schönlein Purpura. *Arthritis Rheum* **33**: 1114-1121, 1990
 - 8) Allen DM, Diamond LK and Howell DA: Anaphylactoid purpura in children (Schönlein-Henoch Syndrome) review with a follow-up of the renal complications. *Am J Dis Child* **99**: 833-854, 1960
 - 9) 宮里義久, 大城 清: Henoch-Schönlein 紫斑病に合併した小児急性陰囊症の 1 例. *西日泌尿* **61**: 714-715, 1999
 - 10) 青木裕次郎, 松井善一, 西川健太, ほか: 小児救急センターにおける急性陰囊症の臨床的検討. *日泌尿会誌* **109**: 131-136, 2018
 - 11) 岡田はるか, 宮寄 治, 染谷真紀, ほか: 今月の症例画像診断. *小児臨* **68**: 169-172, 2015
 - 12) 水戸守真寿, 宮寄 治, 青木英和, ほか: 今月の症例画像診断. *小児臨* **71**: 1-5, 2018
 - 13) Hara Y, Tajiri T, Matsuura K, et al.: Acute scrotum caused by Henoch-Schönlein purpura. *Int J Urol* **11**: 578-580, 2004
 - 14) Loh HS and Jalan OM: Testicular torsion in Henoch-Schönlein syndrome. *Br Med J* **2**: 96-97, 1974
 - 15) Khan AU, Williams TH and Malek RS: Acute scrotal swelling in Henoch-Schönlein syndrome. *Urology* **10**: 139-141, 1977
 - 16) 洲崎 健, 横田孝之, 里見定信: Schönlein-Henoch 紫斑病の経過中に精巣上体垂捻転を併発した男児の 1 例. *小児臨* **50**: 101-103, 1997
 - 17) 酒井直樹, 河本寛治, 福岡 洋, ほか: 急性陰囊症を呈した Henoch-Schönlein 紫斑病の 1 例. *泌尿紀要* **46**: 739-741, 2000
 - 18) 小森慈海, 福島啓太郎, 安藤裕輔, ほか: IgA 血管炎の治療中に急性陰囊症を発症し精巣摘除に至った 4 歳児例. *小児リウマチ* **10**: 11-15, 2019

(Received on March 19, 2020)
(Accepted on June 6, 2020)