症 例

髄外造血所見を呈した小児精索水腫の1症例

八千代病院臨床検査科病理¹⁾, 名古屋保健衛生大学医学部病理学教室²⁾鈴木 守男¹⁾ 社本 幹博²⁾

われわれは、精索水腫穿刺吸引細胞診検査より、髄外造血を強く示唆する1症例を経験した。

患者は、精索部の腫脹を訴え来院した生後2カ月の男児で、精索水腫を確認した。水腫液には骨髓中にみられる赤血球系、顆粒球系、栓球系の各種未熟細胞を含む全骨髓系の血液細胞がみられた。乳幼児期では、髄外造血の頻度は成人に比べて高く、主として肝臓、脾臓、ときにリンパ節に髄外造血の形成をみるが、本症例のごとく精索部に認められ、しかも水腫液からの証明は今まで記載がない。なお患者は造血器疾患はなく健在である。

精索水腫液の細胞診を報告し、若干の文献的考察を行った。

Key words : Spermatic cord—Hydrocele—Aspiration cytology—Extramedullary hematopoiesis—Case report

はじめに

髄外造血は、主として血液疾患に伴ってあらわれ、脾臓、肝臓、ときとしてリンパ節および、その他臓器に形成される。今回のわれわれの症例は、末梢血液検査において白血球数の軽度増加を認めたが、肝・脾・リンパ節の腫大などを認めず、他になんら特記すべき所見がなく、精索水腫穿刺細胞診のみから髄外造血巣を思わせた1症例である。3年半経過した現在、なんら異常を訴えることなく健在である。われわれが調べ得た限りでは、陰囊、精索部における同様症例の報告は、いまだない。

症 例

患 者 : 生後2カ月, 男児。

A case of extramedullary hematopoiesis in the hydrocele of spermatic cord

Morio SUZUKI, C.T., I.A.C.

Department of Central Clinical Laboratory, Division of Pathology, Yachiyo Hospital

Mikihiko SHAMOTO, M.D.

Department of Pathology, Fujita-Gakuen University School of Medicine

論文別刷請求先 ☎446 安城市東栄町1の10の13 八千代病院臨床検査科 鈴木守男

昭和58年6月13日受付

出生時状態 : 出産予定日より40日早く、帝王切開にて出生した。体重2,250 g.

現病歴 : 精索部腫脹を主訴として近医を受診し、当院へ転院した。

来院時現症 : 体重4,300 g, 発育順調で右精索部に10×10 mmほどの水腫様腫瘍を確認した。精索水吸引排除後の触診では異常はなく、肝、脾腫を認めず表在リンパ節は触知されなかった。

来院時検査成績 : 赤血球数 ; $457 \times 10^4 / \text{mm}^3$, 血色素量 ; 15.0 g/dl, ヘマトクリット値 ; 42.3%, MCV ; 91 μ^3 , MCH ; 32 rr, MCHC ; 35%, 白血球数 ; $16.2 \times 10^3 / \text{mm}^3$, その百分率は、好中球 ; 27%, 好酸球 ; 5%, 単球 ; 1%, リンパ球 ; 67% (L—56%, S—11%), 精索部穿刺液 ; 採取液量—0.3 ml, 比重—1.030, 蛋白量—2.6 g/dl, リバルタ反応—陰性で、後述のごとく多系統にわたる各種血液未熟細胞を多数認めた。また好中球、組織球による異物および赤血球、赤芽球貪食像所見も認めた。

細胞所見

赤血球、リンパ球、好中球、好酸球などの正常成熟血球細胞および組織球とともに、各種赤芽球(図1~3)、骨髓球、後骨髓球(図4)、骨髓巨核球(図5)など、赤血球系、顆粒球系、栓球系にわたる全骨髓系細胞を認

めた。

赤血球系においては、正染性赤芽球、多染性赤芽球、塩基性赤芽球、ならびにそれら細胞の核分裂像など、種々成熟段階の赤芽球が多数認められ、出現細胞の主体をなしていた。なお一部の塩基性赤芽球においては、大小不同性、核・細胞質の成熟バランスのみだれなど、細胞判別に苦慮する細胞も出現していた。

顆粒球系の細胞は少数であった。骨髓球（好中性、好酸性）、後骨髓球および細胞質内に多数のアズール顆粒が不均等に分布し、1～2個の核小体を有する前骨髓球～前単球（図6）に相当する細胞を認めた。

栓球系においては、漿液性内容からの細胞であるためか、若干細胞変性をきたした多数の微細アズール顆粒を有する骨髓巨核球を所々に認めた。

その他にも組織肥満細胞（図7）や、小ささまざまな異物を貪食した大食細胞（図8）、赤血球および赤芽球を組織球系細胞（図9）がそれぞれ貪食している像も認められた。

これらの細胞に異型性はなく、腫瘍性細胞とは考えられなかった。

考 察

腹膜鞘状突起内に過量の滲出液が貯留する精索水腫は、比較的発生頻度の高い疾患である。なかでも乳幼児における発生頻度は成人に比して高い。その内容液は一般に透明、淡黄色、中性で、その比重は1.010～1.025、総蛋白量は4.0～6.3%で少数のリンパ球や上皮細胞を含む程度とされている。本症例の水腫液には、好中球やリンパ球などの正常成熟血球細胞や組織球以外に、正染性から塩基性にわたる各種赤芽球、および骨髓球、後骨髓球、骨髓巨核球などを認めた。これら細胞に異型性はみられなかった。したがって白血病などの悪性の血液疾患の浸潤ではなく、また他の血液疾患の存在も考えられず、髄外造血を示唆する細胞所見であった。

髄外造血巣の報告例としては、Veraniによる“胸腔内における髄外造血55例”、Polliakによる“脳硬膜に発生した3例”、Pipolyによる“心膜に発生した1例”、およびLieberman, Antonらの報告など種々あり、出現細胞としては、いろいろな未熟血液細胞を含んでいたと記載している。髄外造血はそれ自体では臨床症状を示さないことが多いとされる³⁾が、報告例の髄外造血の多くは、骨髓線維症、地中海性貧血、遺伝性球状赤血球症など主として血液疾患に伴って現れるケースが大部分である。なかでも骨髓線維症における髄外造血巣の報告症例

は多く、その形成部位としては、肝臓、脾臓のほか、リンパ節^{3,4,6,8,13)}、腎³⁾、肺^{3,8)}、小腸³⁾、胃³⁾、後腹膜^{3,8)}、腸間膜³⁾、大網³⁾、胸膜^{3,8)}、副腎⁶⁾、副睾丸⁹⁾、中枢神経組織³⁾、筋肉⁶⁾、皮膚^{6,11)}、乳腺²⁾、その他の部位が報告されている。しかし本症例のごとき血液疾患の認められない髄外造血に関する症例報告は、Tokumitsu¹⁰⁾、Valdes-Dapena¹²⁾らのものがあるが、数少ない。なお、本症例は3年半経過した現在、なんら異常を訴えることなく健在である。

ま と め

血液疾患を伴わない小児精索水腫液に、髄外造血細胞を認めたまれな1症例を報告し、若干の文献的考察を加えた。

なお、本論文要旨は日本臨床細胞学会地方会（東海支部第2回総会・三重）において発表した。

Summary

A 2 month-old child complained the hydrocele of the spermatic cord and visited our hospital. Aspiration cytology revealed various kinds of erythroblasts and myeloblasts, and megakaryocytes. Namely, orthochromatic polychromatic and basophilic erythroblasts, and metamyelocytes and myelocytes etc. were observed in the aspirated fluid. In addition, macrophages with phagocytosed foreign bodies, red blood cells and erythroblasts were also found. Examination of the blood was normal and atypical blood cells were not observed. There was neither hepatomegaly nor splenomegaly. In other words, physical examination was negative except for hydrocele. Now he is well 3 and half years after. Therefore, this case was diagnosed as extramedullary hematopoiesis in the hydrocele of the spermatic cord and we discussed this rare case.

文 献

- 1) Anton, H.C., Ferguson, J.B.P. and Lewis, G.P.: Pleural extramedullary hematopoiesis in myeloclerosis, Postgrad. Med. J., 43: 428～432, 1967.
- 2) 深田伸二, 蜂須賀喜多男, 山口晃弘・他: 乳腺に髄外造血巣の腫瘍を形成した原発性骨髓線維症の1症例, 癌の臨床, 28: 1295～1299, 1982.
- 3) Glew, R.H., Haese, W.M. and McIntyre, P.A.: Myeloid metaplasia with myelofibrosis-The clinical

- spectrum of extramedullary hematopoiesis and tumor function, *Johns Hopkins Med. J.*, 132 : 253~265, 1973.
- 4) Heuck, G. : Zwei Falle von Leukamie mit eigentumlichem, Blut-resp, Knochenmarksbefund, *Virchows Arch.*, 78 : 475~496, 1879.
 - 5) Lieberman, P.H., Rosvoll, R.V. and Ley, A.B. : Extramedullary myeloid tumors in primary myeloid fibrosis, *Cancer*, 18 : 727~736, 1965.
 - 6) 植原典美, 沢田博美, 田嶋政郎・他 : 全身に皮膚腫瘍形成を伴ない, 組織学的に骨髓3系統の増殖と腫瘍化がみられ, 末期に白血病化した原発性骨髓線維症の1例, *臨床血液*, 20 : 786~793, 1979.
 - 7) Pipoly, G.M. and Rogers, J. : Cardiac tamponade resulting from pericardial extramedullary hematopoiesis, *Cancer*, 44 : 1504~1506, 1979.
 - 8) Pitcock, J.A., Reinhard, E.H., Justus, B.W. and Mendelsohn, R.J. : A clinical and pathologic study of seventy cases of myelofibrosis, *Ann. Intern. Med.*, 57 : 73~84, 1962.
 - 9) Polliack, A. and Rosenmann, E. : Extramedullary hematopoietic tumors of the cranial dura mater, *Acta Haemat.*, 41 : 43~48, 1969.
 - 10) Tokumitsu, S., Tokumitsu, K., Takeya, M. and Takeuchi, T. : Developmentally heterotopic urogenital tissues in a retroperitoneal lipoma with hematopoiesis, *Acta Pathol. Jpn.*, 31 : 289~297, 1981.
 - 11) Tseng-Tong, K., Uhlemann, J. and Rienhard, E.H. : Cutaneous extramedullary hematopoiesis, *Arch. Dermatol.*, 112 : 1302~1303, 1976.
 - 12) Valdes-Dapena, M.A., Gillane, M.M., Ross, D. and Catherman, R. : Extramedullary hematopoiesis in the liver in sudden infant death syndrome, *Arch. Pathol. Lab. Med.*, 103 : 513~515, 1979.
 - 13) Verani, R., Olson, J. and Moake, J. : Intrathoracic extramedullary hematopoiesis, *Amer. J. Clin. Pathol.*, 73 : 133~137, 1979.
-

図 1 正染色性、多染色赤芽球 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 4 後骨髓球 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 2 塩基性赤芽球 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 5 骨髓巨核球 (Wright-Giemsa 染色, $\times 400$)

図 3 赤血球細胞の核分裂像 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 6 前骨髓球～前単球と思われる細胞 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 7 組織肥満細胞 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 9 組織球の赤血球, 赤芽球貪食像 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)

図 8 異物貪食細胞 (Wright-Giemsa 染色, $\times 780$)