原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の2例

北海道大学医学部泌尿器科 (主任: 小柳知彦教授)

坪 俊輔 野々村克也 小林 真也

高山 直久 丸 彰夫 小柳 知彦

北海道大学付属病院病理部 (主任: 相沢 幹教授)

野 島 孝 之

名寄市立総合病院泌尿器科 (主任: 佐藤昭策博士)

佐 藤 昭 策

TWO CASES OF PRIMARY SCLEROSING LIPOGRANULOMA IN SCROTUM

Syunsuke Tsubo, Katsuya Nonomura, Sinya Kobayashi,

Naohisa Takayama, Akio Maru and Tomohiko Koyanagi

Department of Urology, Hokkaido University, School of Medicine, Sapporo Japan

(Director: Prof. T. Koyanagi)

Takayuki Nojima

Department of Pathology, Hokkaido University Hospital, Sapporo Japan

(Director: Prof. M. Aizawa)

Syousaku Sato

Department of Urology, Nayoro City General Hospital, Nayoro Japan

(Director: DR. S. Sato)

Two adult cases of primary sclerosing lipogranuloma in the scrotum were reported. Both were noticed as an incidental intrascrotal mass, preceded by an exposure of the perineoscrotal area to coldness, but with no history of foreign body injection. Scrotal exploration was performed. Characteristically, the mass was Y-shaped with its stem located in the perineum and above the ventralis of the urethra, and branched off at the penoscrotal junction extending anterolaterally along the spermatic cord on both sides. Histologically, both were sclerosing lipogranuloma. This benign scrotal disease is thought to be a new clinical entity.

要旨: 特異な形状を呈する陰嚢内腫瘍の2例を経験した。症例は、陰嚢内無痛性腫瘍を主訴として受診した32歳および49歳の成人男子である。陰嚢内の原発性腫瘍として腫瘍摘出を試みると、陰嚢正中部皮下で会陰部より陰茎根部まで尿道腹側を覆うように位置し、そこで分岐して両側そけい部に連続するY字型の特徴を有する腫瘍がみられた。組織学的には双方とも sclerosing lipogranuloma であった。臨床経過として1例は腫瘍発症前に冬期の冷海水を陰嚢部に浴びており、他例はサウナ風呂にて冷水浴を行っていた。また術後の創部浮腫に対して冷電法を施行したところ腫瘍の急速な再発をみたが、冷電法中止によりすみやかに消退した。

本疾患は内因性脂肪壊死の存在の有無および異物性肉芽腫との鑑別を中心に臨床的評価がわかれているが、①寒冷暴露などに起因する陰嚢皮下脂肪組織の内因性壊死と続発する肉芽腫形成が本体であり、②腫瘍の特徴的な形状は成人の陰嚢皮下脂肪組織の分布様式に規定され、③保存的に治癒する可能性を有しており、原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫として、成人の陰嚢内腫瘍病変の鑑別時、留意すべき新たな clinical entity であると思われる。

緒 言

陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫は異物性肉芽腫との鑑別を

中心に評価がわかれ、いまだ臨床的概念が確立されていない文献上まれな疾患である。今回、特異な形状を

呈する陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の2例を経験したので、本邦文献上の類似症例とともにその原因、診断、治療などにつき検討し報告する。

症 例

症例1. 32歳, 男性.

主訴: 陰嚢内腫瘍.

家族歴, 既往歴: 特記すべきことはない.

現病歴: 偶然に気付いた陰嚢内腫瘍の精査を求め、1985年12月16日名寄市立総合病院泌尿器科を受診した。腫瘍に疼痛なく発熱もない。患者は陰嚢内異物注入を否定し、陰嚢内原発性腫瘍の疑いで入院した。

現症: 胸腹部に異常はなく表在リンパ節も触知しない。前立腺は触診上正常である。陰嚢に発赤、浮腫は認めない。腫瘍は正常に触知する睾丸および副睾丸とは独立して、陰嚢正中中部で会陰部より陰茎根部にむけて尿道腹側を覆うように存在し、圧痛はなく、表面不整、軟骨様硬に触知した。

検査成績: 尿所見は正常。末梢血液所見で貧血はないが白血球 $10,700/\text{mm}^3$ と増多を認める。血液生化学所見に異常なくAFP、 β -HCG等は正常であった。

X線検査: 胸部写真、経静脈性腎盂撮影、尿道撮影に異常は認めなかった。

以上より陰嚢内腫瘍の診断で手術を施行した。

手術所見: 陰嚢に正中切開を加えると容易に灰白色の腫瘍を確認しえた。腫瘍は総鞘膜の外でいわゆるdartos layerにあり尿道海綿体、陰茎海綿体との癒着はみられず、会陰部より尿道海綿体を覆うように陰茎根部に至り、ここで分岐して左右の精索後側面に沿って両側そけい部へと連続し、全体としてY字型を呈していた。両側そけい部の奥に連なる部分は残して腫瘍を摘除し手術を終えた。

組織学的所見: 既存の脂肪組織は肉芽腫性炎症細胞浸潤と繊維成分の増生によって置き換わっており、その間に変性、壊死に陥った大小の脂肪細胞が散在性にみられる。炎症細胞は好中球、好酸球およびリンパ球、形質細胞からなり、また多数の組織球と異物多核巨細胞が集簇し、肉芽腫を形成している。間質は膠原繊維からなり、部分的に硝子化を示している。サルコイドーシスや結核を示唆する類上皮結節や乾酪壊死はみられない。また、真菌や細菌感染の所見および腫瘍性変化の所見もなく、sclerosing lipogranulomaと診断された(第1図)。

術後経過: 術後2年を経過し再発をみない。

症例2: 49歳, 男性.

第1図 病理組織像(症例1)。強い炎症細胞の浸潤と異物巨細胞及び組織球からなる多数の肉芽腫の形成をみる。左上には変性、壊死に陥った脂肪細胞がみられる(HE染色, $\times 40$)

第2図 症例2の術中写真。S: 尿道海綿体, ←: 硬化性脂肪肉芽腫。

主訴: 陰嚢内腫瘍.

家族歴, 既往歴: 特記すべきことはない.

現病歴: 偶然に気付いた陰嚢内小腫瘍が増大するため、約1ヵ月後の1986年5月15日精査を求め函館中央病院泌尿器科を受診した。腫瘍に疼痛なく発熱もない。患者は陰嚢内異物注入を否定し、陰嚢内原発性腫瘍の疑いで入院した。

現症: 胸腹部に異常はなく表在リンパ節も触知しない。前立腺は触診上正常である。陰嚢に発赤、浮腫は

第3図-a 病理組織像(症例2)。既存の脂肪組織は炎症細胞と膠原繊維によって置き換っている。散在性に变性、壊死を示す脂肪細胞をみる。(HE染色, $\times 40$)

第3図-b 同拡大像。組織球と異物多核巨細胞が集簇し結節を形成している。

認めない。腫瘍は正常に触知する睾丸、副睾丸、精索とは独立して陰嚢正中部及び両側陰嚢起始部に存在し、圧痛はなく、表面不整、軟骨様硬に触知した。

検査所見：尿所見は正常。末梢血液所見で貧血はないが、白血球 $9,200/\text{mm}^3$ と軽度増多を認める。血液生化学所見に異常はない。血沈 4mm/hr 、CRP 0.5mm 、AFP、 $\beta\text{-HCG}$ ともに正常範囲であった。

X線検査：胸部写真、経静脈性腎盂撮影、尿道撮影に異常は認めなかった。

手術所見：症例1と同様で、尿道腹側を覆い両側そけい部に連なるY字型の腫瘍を摘除した(第2図)。

組織学的所見：症例1と同様 sclerosing lipogranuloma と診断された(第3図a, b)。

術後経過：創は一次的に治癒したが、創部の軽い疼痛と浮腫が続くため、陰嚢部冷電法を指導し、術後12日に退院した。患者は退院後も冷電法を続けていたところ腫瘍の再発に気づき、再度受診した。腫瘍は手術創の直下で陰嚢正中に再発し、小指頭大、表面不整、骨様硬に触知し、圧痛を伴った。消炎剤を投与してさらに経過をみたが、1週間後には腫瘍は拇指頭大にまで増大した。そこで腫瘍の再発と陰嚢部冷電法の関連を疑いこれを中止して経過をみたところ、腫瘍は急速に縮小して約3週間後にはまったく消失し、その後11

カ月再発をみていない。

以上の臨床経過から、陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫と陰嚢部寒冷暴露との関連を推測し、既往歴の再聴取を行った。症例1では患者は養殖業を営み、12月の冷海水を陰嚢部に浴びていた。症例2では、患者は腫瘍に気付く数日前にサウナ風呂にて冷水浴をしており、いずれも腫瘍発症前の陰嚢部寒冷暴露の既往が明らかにされた。

考 察

陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫は陰嚢皮下脂肪組織に壊死が起き、これに続発して肉芽腫を形成する病態であるが、従来よりこの脂肪壊死を起こす原因を中心に議論の多い疾患である。Smetana ら¹⁾は1950年、陰嚢内への異物注入の既往のない症例を“原発性”として報告した。彼らは、陰嚢の打撲や軽微な外傷などが原因で皮下脂肪組織に虚血・壊死がおり、この内因性脂肪壊死に続発して肉芽腫が形成される、と説明している。その後 Marcial-Rojas²⁾、Gottesman ら³⁾が同様の立場から報告を行なっている。一方で、内因性脂肪壊死の存在を否定する立場からの報告も多い。これは罹患部の特殊性から cosmetic な理由などで行なった外性器への異物注入の既往を患者が隠している場合が殆どだとする説⁴⁾⁵⁾で、Oertel ら⁶⁾は、“原発性”として報告さ

表 1 原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の本邦報告例

報告者 (年度)	年齢 (歳)	治療及び経過
1. 石塚他 (1980) ⁷⁾	36	腫瘍摘除
2. 高橋他 (1980) ⁸⁾	43	腫瘍摘除
3. 高橋他 (1980) ⁸⁾	37	腫瘍摘除
4. 堀井他 (1983) ⁹⁾	38	腫瘍摘除
5. 堀井他 (1983) ⁹⁾	32	腫瘍摘除
6. 富岡他 (1986) ¹⁰⁾	36	腫瘍摘除
7. 富岡他 (1986) ¹⁰⁾	40	腫瘍摘除
8. 富岡他 (1986) ¹⁰⁾	50	生検のみ⇒自然退縮
9. 吉田他 (1987) ¹¹⁾	39	腫瘍摘除
10. 自験例	32	腫瘍摘除
11. 自験例	49	腫瘍摘除⇒再発⇒自然退縮

れている23例の男子外性器硬化性脂肪肉芽腫を分光分析法を用いて再検し、その21例に paraffin hydrocarbon を証明したとして、内因性脂肪壊死の存在を否定し、油脂物質の注入が肉芽腫形成の原因であるとしている。

以上のように、いまだその発生原因に関して意見のわかれる疾患であるが、本邦では、異物注入の既往がなく腫瘍が自験例の如き特異な形状を呈する症例の報告が散見される。我々が調べ得たかぎりこれに合致する報告は9例^{7)~11)}あり、自験2例を加え11例となる(表1)。発症年齢は32歳から50歳と総て成人である。腫瘍は殆どが陰嚢内中央あるいは陰茎根部に触知されて無痛性であり、陰嚢の発赤、腫脹等の局所炎症所見を欠く。手術的に確認された腫瘍の形態についてはチョッキ型、T字型、Y字型などと記載されている。本症の原因については文献上不明とされてきた。しかし自験例においてはその偶然的臨床経過から、陰嚢部寒冷暴露による内因性脂肪壊死と続発する肉芽腫形成との関連が明らかになった。従来、本症と類似の組織像を呈し幼小児にのみ発症する疾患がHinmanら¹²⁾の報告以来 scrotal fat necrosis として確立しており、その約60%で水泳などでの陰嚢部寒冷暴露が発症の原因であるとの報告もある¹³⁾。一方、陰嚢皮下脂肪組織は思春期前には陰嚢全体に豊富に存在するものの二次性徴の発来とともに急速に消退することから、scrotal fat necrosis は成人にはみられない疾患とされてきた¹³⁾¹⁴⁾。しかしここで成人の陰嚢皮下脂肪組織についてみると、陰嚢正中部で両側の総鞘膜にはさまれた位置には会陰部より陰茎根部まで皮下脂肪組織が存在している(第4図)。さらにShafikら¹⁵⁾の検討によれば、精索後面にはextra-tunicary patch of fatが存在し陰

第4図 右陰嚢横断面図。17)より引用

茎根部で合流して“Triangular in shape with the base upward”を呈しており、この会陰部～陰茎根部～両側そけい部と連続する皮下脂肪組織に肉芽腫を形成したとすれば、本疾患に特徴的な形態である。“尿道腹側を覆い陰茎根部で分岐して両側そけい部に連なるY字型の腫瘍”と矛盾がない。本疾患の治療法については、従来腫瘍摘除のみが唯一の方法とされてきた。本疾患と類似症例と推察される報告の中には、悪性腫瘍を疑い除辜術および後腹膜リンパ節廓清術を行なったとの報告もある¹⁶⁾。しかし自験例では再発した腫瘍が寒冷暴露を中止することにより消失しており、また本邦報告例の中の1例に生検のみで保存的に治癒したとの報告がある事¹⁰⁾、さらに原因および組織像ともに本疾患と共通性があると考えられる幼小児のscrotal fat necrosis は寒冷暴露を避けた保存的療法で治癒し、手術療法はとるべきではないとされている事¹³⁾¹⁴⁾から、本疾患に対してはまず保存的に治療する事が望ましいと思われる。

組織学的所見では、既存の脂肪組織が多数の組織球、異物多核巨細胞及びリンパ球などの炎症性細胞の浸潤と繊維成分の増生からなる肉芽腫によって置き換わり、その間に変性、壊死に陥った脂肪細胞をみることが特徴的である。なお、サルコイドーシスや結核との鑑別を要するが、それらに特徴的な類上皮結節や乾酪壊死を欠く。

以上より、原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫につき、その診断、治療に関する我々の検討を要約すると以下の如くである。

A. 診断

- 1) 成人に発症する。
- 2) 陰嚢内に異物注入の既往がない。
- 3) 発症前、陰嚢部に寒冷暴露をうけている可能性が高い。

4) 通常、睪丸、副睪丸、精索とは独立して存在する腫瘍で、陰嚢正中会陰部～陰茎根部～両側そけい部と連なる Y 字型の範囲内に触知し、無痛性で、陰嚢の発赤、腫脹等の局所炎症所見に乏しい。なお、肉芽腫性変化をきたす前の acute fat necrosis の時期では、陰嚢皮膚の炎症所見が比較的強い可能性がある。

B. 治療

以上の 1)～4) より本疾患を疑ったならば観血的操作を行なうにしても最小限の生検にとどめ、寒冷暴露を避けた保存的経過観察で腫瘍が消退する可能性を示した。

なお、本疾患の報告は極めて少ないが、これは臨床的評価が確立されていないことや、油脂物質の注入による異物性肉芽腫との鑑別の点で混乱があるためと考えられ、実際の臨床的頻度はさらに高いと想定される。したがって本疾患は成人の陰嚢内腫瘍病変の鑑別時、保存的に治療すべき疾患として十分に考慮すべき新たな clinical entity であると考えらる。

結 語

原発性陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の 2 例を経験し、その診断、治療を含めた臨床的評価につき検討を加え報告した。

文 献

- 1) Smetana, H.F. and Bernhard, W.: Sclerosing lipogranuloma. Arch. Pathol., 50, 296—325, 1950.
- 2) Marcial-Rojas, R.A., Colon, J.E. and Figueroa, J.J.: Sclerosing lipogranulomas of the male genitalia: Report of one case review of the literature. J. Urol., 75, 334—338, 1956.
- 3) Gottesman, J.E., Ehrlich, R. and Newell, M.: Granulomatous disease of male genitalia. Urology, 8, 68—72, 1976.
- 4) Newcomer, V.D., Graham, J.H., Schaffert, R.R. and Kaplan, L.: Sclerosing lipogranuloma resulting from exogenous lipids. Arch. Dermatol., 73, 361—372, 1956.
- 5) Arduino, L.J.: Sclerosing lipogranuloma of male genitalia. J. Urol., 82, 155—161, 1959.
- 6) Oertel, Y.C. and Johnson, F.B.: Sclerosing lipogranuloma of male genitalia. Arch. pathol. lab. med., 101, 321—326, 1977.
- 7) 石塚栄一, 藤井 浩, 岩崎 皓, 佐々木佳郎: 悪性腫瘍を思わせた陰嚢内の肉芽腫. 日赤医学, 32, 68, 1980.
- 8) 高橋陽一, 飛田牧一, 山内民雄, 真田俊吾: 陰嚢内の sclerosing lipogranuloma の 2 例. 日泌尿会誌, 71, 430, 1980.
- 9) 堀井泰樹, 松田公志, 飛田収一, 高橋陽一: 特異な形態を呈した陰嚢内硬化性脂肪肉芽腫の 2 例. 日泌尿会誌, 74, 1482, 1983.
- 10) 富岡 進, 布施秀樹, 脇坂正美, 島崎 淳, 松崎理: 特異な形状を呈する陰茎根部陰嚢内異物肉芽腫の 3 例. 日泌尿会誌, 77, 1026, 1986.
- 11) 吉田全範, 北村慎治, 藤永卓治: 陰嚢内に発生した硬化性脂肪肉芽腫の 1 例. 泌尿紀要, 33, 137—140, 1987.
- 12) Hinman, F. and Johnson, C.M.: Differential diagnosis of acute fat necrosis in the scrotum. J. Urol., 41, 726—732, 1939.
- 13) Hollander, J.B., Begun, F.P. and Lee, R.D.: Scrotal fat necrosis. J. Urol., 134, 150—151, 1985.
- 14) Nemoy, N.J., Rosins, S. and Kaplan, L.: Scrotal panniculitis in the prepuberal male patient. J. Urol., 118, 492—493, 1977.
- 15) Shafik, A. and Olfat, S.: Scrotal lipomatosis. Brit. J. Urol., 53, 50—54, 1981.
- 16) 稲積秀一, 鈴木唯司: 左陰嚢内脂肪肉芽腫の 1 例. 日泌尿会誌, 71, 1111, 1980.
- 17) 西 成甫 監修, 人体局所解剖図譜. II 222, 金原出版株式会社, 東京, 1974.

(1987年7月26日受理)