急性陰囊症にて再発した急性リンパ性白血病の精巣浸潤の1例

群馬大学医学部附属病院泌尿器科¹⁾, 同 小児科²⁾

新田 貴士¹⁾ 小池 秀和¹⁾ 深堀 能立¹⁾ 羽鳥 基明¹⁾
小野 芳啓¹⁾ 松井 博¹⁾ 鈴木 和浩¹⁾ 山中 英壽¹⁾
志川 葉子²⁾ 金澤 崇²⁾ 小川千登世²⁾

ACUTE SCROTUM FROM TESTICULAR INVOLVEMENT IN ACUTE LYMPHOCYTIC LEUKEMIA: A CASE REPORT

Takashi Nitta¹⁾, Hidekazu Koike¹⁾, Yoshitatsu Fukabori¹⁾, Motoaki Hatori¹⁾,
Yoshitaka Ono¹⁾, Hiroshi Matsui¹⁾, Kazuhiro Suzuki¹⁾, Hidetoshi Yamanaka¹⁾,
Youko Shigawa²⁾, Takashi Kanazawa²⁾ and Chitose Ogawa²⁾

¹⁾Department of Urology, Gunma University School of Medicine

²⁾Department of Pediatrics, Gunma University School of Medicine

A 8-year-old boy with acute lymphocytic leukemia (ALL) had received chemotherapy and a complete bone marrow remission was obtained. Then he underwent bone marrow transplantation. After 6 months, he suddenly got left flank-low abdominal pain. Sequentially, he had swelling and redness of left scrotum, left testicular swelling and tenderness. Incision was done and enlarged and hard testis was diagnosed as testicular tumor, left orchiectomy was performed. Histological diagnosis was involvement of ALL, so he received radiotherapy. He remains free of disease by the present after 7 months.

Key words: Acute scrotum, Acute lymphocytic leukemia, Testicular involvement

要旨: 症例は8歳, 男児. 急性リンパ性白血病(ALL)にて化学療法施行後, 完全寛解ののち, 骨髄移植を施行した. 半年後突然, 左側腹・下腹部痛・左陰囊の腫脹と発赤・左精巣の腫大圧痛を認め, 急性陰囊症として試験切開を試行. 精巣の腫瘍性腫大を認め, 左精巣を摘出した. 病理組織学的所見はALL浸潤であった. 術後, 放射線療法を施行. 7カ月後の現在再発は認められていない.

キーワード: 急性陰囊症, 急性リンパ性白血病, 精巣浸潤

緒 言

小児の急性陰囊症の鑑別として, 精巣捻転, 付属器捻転, 精巣上体炎, 精巣破裂, 腫瘍などがあるが, 本邦ではALLの精巣浸潤が急性陰囊症として発症した例は報告されていない.

今回我々は, 急性リンパ性白血病の完全寛解および骨髄移植後, 急性陰囊症にて発症した精巣浸潤の1例を経験したので報告する.

症 例

患者: 8歳, 男児.

主訴: 左側腹部・下腹部痛, 左精巣の痛性腫大.

既往歴: 2001年7月, 急性リンパ性白血病(ALL)と

診断された. 約2カ月間メソトレキセートを主体としたL99-I5HEXによる化学療法施行後に完全寛解を確認され, 2002年3月, 非血縁者間同種骨髄移植(HLA完全一致, 血液型不適合)施行.

家族歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 2002年9月20日朝より間欠的な左側腹部および下腹部痛を認め, 夕方になり左陰囊の腫脹, 発赤と圧痛に気づいたため, 急性陰囊症として当科紹介となった.

現症: 身長128.3cm, 体重39.2kg, 体温38.7℃, 左側腹部・下腹部痛あり, 左陰囊の発赤・腫大が認められた(図1). 左精巣は硬く腫大し, 圧痛あり. 表面は平

図1 陰嚢外観。左側の発赤及び腫脹を認める。

図2 左精巣超音波所見。充実性腫瘍像を呈する。

滑で透光性なく、精巣の軸変位はなかった。精巣上体は精巣との境界不明瞭で、腫大の有無は判定不能であった。表在リンパ節は触知しなかった。排尿時痛はなかった。

超音波所見：左精巣全体の充実性の腫大が認められた(図2)。ドップラーエコーでは内部の拍動性の血流を認めた。

検査所見：Hb 10.2g/dl, WBC 11,200/ μ l, GOT 35 IU/l, GPT 40IU/l, BUN 14mg/dl, Cr 0.4mg/dl, CRP 0.2mg/dl, LDH 233IU/l, ALP 573IU/l, 肝腎機能は異常なかった。hCG- β , AFPの上昇もなく、検尿に異常は認められなかった。

精巣捻転、精巣上体炎、精巣腫瘍、ALLの精巣浸潤を疑い、急性陰嚢症として試験切開を施行した。

手術所見：陰嚢前面を縦切開し、左精巣を脱転した。左精巣は硬く腫大し精索、精巣の捻転は認めなかった。

図3 摘出精巣(左)の肉眼的所見。左精巣全体が白色充実性の腫瘍に占拠されている。

図4 左精巣組織所見。(×400) 白血病細胞のびまん性浸潤増殖を認める。

腫瘍性病変と判断し、可能な限り高位で左精巣を精巣上体、精索とともに切除した。

摘出標本：断面は全体が白色な充実性の腫瘍で、肉眼的に正常な精巣組織は認められず、精巣内に出血はなかった。精索、精巣上体との境界は明瞭であった(図3)。

病理組織学的所見：白血病細胞がびまん性に浸潤増殖しており、ALLの再発であることが判明した。正常な精細管は認めなかった(図4)。精巣上体、精管に異常所見はなかった。

術後経過：術後、腹痛は消失した。全身検索にて明らかな再発所見認めなかったため、左精巣に局限したALLの再発として、手術部位と対側精巣および領域リンパ節に対し放射線照射(20Gy)施行した。現在、小

児科・泌尿器科外来にて経過観察中であるが、7カ月後の現在、再発なく経過良好である。

考 察

本例では急性陰嚢症にて ALL の精巣浸潤が発症しているが、急性陰嚢症における腫瘍の占める割合は 5% 程度といわれている¹⁾。腫瘍は通常無症候性であり、急性陰嚢症として発見される場合も外傷等で偶然に発見されることが多く、本例のような発症形式は非常に稀といえる。本例では、左側腹部・下腹部痛および陰嚢の腫脹・発赤・圧痛が認められた。発赤・圧痛を認めた理由としては、数時間という短時間に陰嚢内容が急激に増大したことによる物理刺激が最も考えられる。

精巣は ALL における好発部位であり、精巣再発に関しては、小児の ALL 患者の 5~30% に認められる²⁾。白血病細胞の精巣浸潤の発生機序については、血液—精巣関門が存在し薬理学的な聖域となっているという説³⁾や、解剖学的に低温であるために、白血病細胞が dormant cell の状態で存在するため、抗癌剤の効果が少ないという説⁴⁾などが考えられている。

精巣浸潤の主な治療としては、精巣摘出術、局所の放射線照射、系統的化学療法が挙げられる。最近は二次性徴や精神面での影響が問題となり、精巣摘出は行わず放射線照射と化学療法の併用療法が行われることが多い。精巣再発の場合、一側に再発が認められた際、組織学的にみれば対側にも再発が起きていることがほとんどであるため両側照射を原則とし、線量は 20~25Gy が必要とされる⁵⁾。

ALL の精巣浸潤の予後については必ずしも良好なものではなく、藤生ら⁶⁾は精巣浸潤 17 例中、生存は 3 例にすぎず、精巣白血病発症から死亡までの期間は平均 23.3 カ月と述べている。また辻ら⁷⁾の報告では 9 例中 6 例が死亡しており、特に ALL 治療開始後 1 年以内に精巣浸潤を来したものは他に比べて早期に死亡したと述べている。さらに山中ら⁸⁾の報告では 60 例中死亡例が 35 例で、ほとんどが 3 年未満に集中しており、一方生存例は 25 例で、2 年半以後にまんべんなく見られていることより、ALL 発症から 3 年をめぐるとし

て、それ以前に浸潤がみられる予後不良群と、それ以前の予後良好群に分けられると述べている。

本症例は、B-Precursor ALL という小児の ALL では最も多く、予後も比較的よいタイプの白血病である。移植後経過は順調であったものの、day185 に精巣への再発を認め、移植後早期の再発を認めたという点においては、悪性度の高い腫瘍細胞であることが考えられる。そのため、妊孕性を犠牲にしてまでも対側の精巣に照射を行った。しかし、照射終了後の時点で全身状態が良好で、CT や骨シンチグラフィーにて再発所見が明らかではなかったことより、今後再発率の高い骨髄・中枢神経、対側精巣に対して定期的な検索と注意深い経過観察を行っていくことにし、治療を終了することとした。今後再発が認められれば、化学療法や手術等の追加治療の検討が必要と思われる。

文 献

- 1) 竹澤 豊, 柴田康博, 岡村圭吾, 大竹伸明, 中野勝也, 栗田 晋, 深堀能立, 黒川公平, 鈴木孝憲, 山中英寿: 急性陰嚢症の臨床的検討. 北関東医学, **46** (2), 155—160, 1996.
- 2) Bowman, P.W., AUR RJA, Husta, H.O. and Rivera, G.: Isolated testicular relapse in acute lymphocytic leukemia of childhood: Categories and influence on survival. J chin Oncol, **2**, 924—929, 1984.
- 3) Finklestein, J.Z., et al.: Leukemic infiltration of the testis during bone marrow remission. Pediatrics, **43**, 1042—1045, 1969.
- 4) Wong, K.Y. et al.: Clinical and occult testicular leukemia. J. Pediatr, **96**, 569—574, 1980.
- 5) Kuo, T.T., Tschang, T.P. and Chu, J.Y.: Testicular relapse in childhood acute lymphocytic leukemia during bone marrow remission. Cancer, **38**, 2604—2612, 1976.
- 6) 藤生道子・別所文雄: 小児の急性リンパ性白血病と睾丸再発. 臨床血液, **23**, 33—39, 1982.
- 7) 辻浩一郎: 小児急性白血病における睾丸浸潤の臨床的観察. 臨床血液, **22**, 1412—1419, 1981.
- 8) 山中幹基, 申 勝, 西村和郎, 岩崎 明, 三好進, 水谷修太郎: 精巣浸潤をきたした急性リンパ性白血病の 1 例. 西日泌尿, **55**, 1474—1477, 1993.

(2003 年 8 月 12 日受付, 2004 年 1 月 9 日受理)