

症 例

精巣病変を伴ったサルコイドーシスの1例

豊嶋 幹生^{1,2)} 千田 金吾²⁾ 増田 昌文¹⁾ 江口 豊寿¹⁾
妹川 史朗²⁾ 中村祐太郎²⁾ 須田 隆文²⁾ 中村 浩淑²⁾

要旨: 症例は68歳, 男性. ぶどう膜炎, 両側精巣腫大にて受診. 胸部X線上, 両側下肺野スリガラス状影, 胸部CTにて縦隔リンパ節腫大, Gaシンチにて肺門・縦隔に加えて, 両側精巣に著明な取り込みを認めた. BALFリンパ球は32.3%と増加, CD4/8比は9.58と高値を示し, TBLB, 精巣生検にて非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認め, 精巣病変を伴ったサルコイドーシスと診断した. ステロイド剤全身投与を行わず, 経過観察したところ, 若干の肺野病変の進行および肺門・縦隔リンパ節の増大傾向を認めているが, 自覚症状に乏しく, 精巣病変の増悪もなく, 引き続き経過観察中である. サルコイドーシスの精巣病変は稀であり, 検索し得た限りでは12例の臨床報告があるのみであった.

キーワード: 精巣サルコイドーシス, 生殖器病変, 肺外病変

Testicular sarcoidosis, Genital sarcoidosis, Extrapulmonary lesion of sarcoidosis

はじめに

サルコイドーシスはリンパ節, 肺, 眼, 皮膚などに非乾酪性類上皮細胞肉芽腫が認められる原因不明の全身性疾患であるが, 生殖器系に病変が認められることは稀である.

今回, 我々は, 霧視, 精巣腫大にて発症し, 精巣生検にてサルコイド病変を認めたサルコイドーシスの1例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する.

症 例

症例: 68歳, 男性.

主訴: 霧視, 精巣腫大.

既往歴: 38歳, 十二指腸潰瘍.

65歳~高血圧.

家族歴: 父, 高血圧, 母, 急性心筋梗塞.

喫煙歴: 20~50歳, 10本/日.

現病歴: 平成10年2月頃より両眼の霧視が出現した. 同年8月上旬より両側精巣の腫大を自覚していた. 8月10日当院眼科を受診し, ぶどう膜炎と診断され, ステロイド点眼薬にて症状は改善したが, 胸部X線上, 両側下肺野にスリガラス状陰影を認めたため, 精査目的にて9月22日当科紹介入院となった.

現症: 身長162cm, 体重57.5kg, 体温36.5, 血圧

〒424 8636 清水市宮加三 1231

¹⁾清水市立病院内科

²⁾浜松医科大学第2内科

(受付日平成11年6月30日)

136/72 mmHg, 脈拍76回/分・整. 貧血, 黄疸, 浮腫, チアノーゼを認めず. 表在リンパ節を触知せず. 胸部聴診所見, 腹部所見, 神経学的所見には異常を認めなかった. 両側精巣は弾性硬に腫大していたが, 圧痛は認めなかった.

入院時検査所見 (Table 1): 検尿, 血算には異常を認めなかった. 血沈1時間値が27mmと軽度亢進していた. 生化学では異常を認めず, 血清ACE値も正常であった. 免疫学的には異常を認めず, ツベルクリン反応は5×4/7×5mmと陰性であった. 血液ガス分析では軽度の低酸素血症を認めた. 気管支肺胞洗浄ではリンパ球の増加, CD4/8比の上昇を認めた. 心電図では異常を認めなかった.

入院時胸部X線所見 (Fig. 1): 両側下肺野に軽度のスリガラス状陰影を認めた.

胸部CT所見: 両側下葉背側に淡い肺野濃度上昇 (Fig. 2) および気管分岐下リンパ節の腫大 (Fig. 3) を認めた.

陰嚢超音波検査: 精巣は右側49×35×23mm, 左側39×30×21mmと腫大しており, 精巣上体の腫大も認めた.

Gaシンチグラム (Fig. 4): 両側眼球周辺, 耳下腺, 肺門・縦隔, 左下肺野のほか, 両側精巣への著明な取り込みを認めた.

経気管支肺生検病理組織像 (Fig. 5): 右B⁸より採取した肺組織に類上皮細胞肉芽腫を認めた.

精巣生検病理組織像 (Fig. 6): 精巣組織中に多数の類上皮細胞肉芽腫を認めた.

Table 1 Laboratory data on admission

Hematology		D. Bil	0.17 mg/dl	Respiratory function	
WBC	6,200 /mm ³	GOT	18 IU/l	VC	2.76 l
Neut	67.3 %	GPT	24 IU/l	%VC	85.1 %
Eos	2.6 %	LDH	280 IU/l	FEV _{1.0}	1.95 l
Bas	0.3 %	GTP	12 IU/l	FEV _{1.0} %	79.2 %
Lym	22.2 %	ALP	156 IU/l	Sputum	
Mon	7.6 %	ACE	14.9 IU/l	Culture	Normal flora
RBC	442 × 10 ⁴ /mm ³	Immunology		Cytology	Class 1
Hb	14.0 g/dl	CRP	0.3 mg/dl	Electrocardiogram	No abnormality
Plt	32.2 × 10 ⁴ /mm ³	IgG	1,350 mg/dl	Bronchoalveolar lavage(Rt. B ^s)	
ESR	27 mm/hr	IgA	291 mg/dl	Recovery	49.3 %
Biochemistry		IgM	101 mg/dl	T.C.C.	0.17 × 10 ⁵ ml
TP	7.4 g/dl	PPD(0.05)	5 × 4/7 × 5	AM	67.6 %
Alb	3.8 g/dl	Arterial blood gas analysis		Lym	32.3 %
BUN	19 mg/dl	pH	7.420	Neut	0.1 %
Crt	0.8 mg/dl	PaCO ₂	44.1 Torr	CD4/CD8	9.58
T. Bil	0.57 mg/dl	PaO ₂	75.7 Torr		

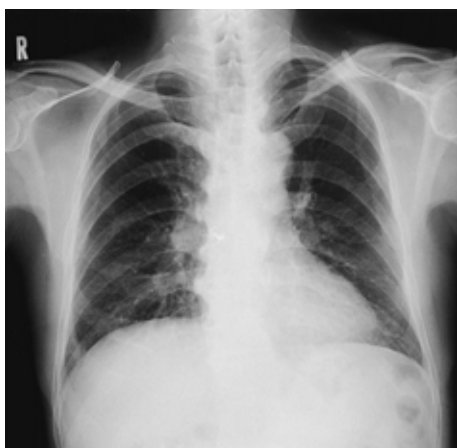


Fig. 1 Chest X-ray film showing ground-glass shadows in the lower fields of both lungs.



Fig. 3 Chest CT scan showing mediastinal lymphadenopathy of subcarina (# 7)

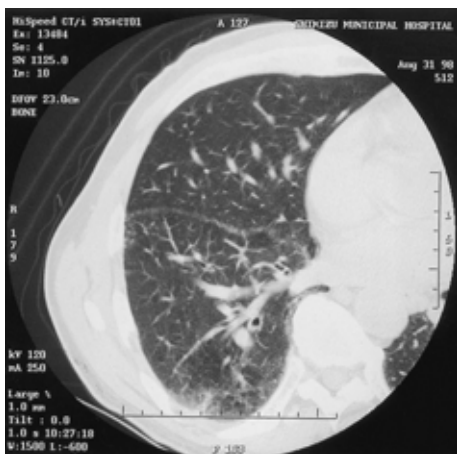


Fig. 2 Chest CT scan showing ground-glass opacity in both lower lobes.

臨床経過：以上の検査結果より，精巣病変を伴ったサルコイドーシスと診断した．精巣痛などの自覚症状を認めず，生殖年齢を過ぎていることおよび，ホルター心電図，TI心筋シンチグラムにて心病変を疑わせる所見を認めなかったことから，ステロイド剤の全身投与は行わず，経過観察したところ若干の肺病変の進行，肺門・縦隔リンパ節の増大傾向を認めているが，自覚症状に乏しく，心病変の出現や精巣病変の増悪もなく，引き続き経過観察中である．

考 察

本症例はぶどう膜炎，両側精巣の腫大にて発症し，Gaシンチグラムにて両側精巣に著明な取り込みを認め，経気管支肺生検，精巣生検にて非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認め，精巣病変を伴うサルコイドーシスと診断された症例である．

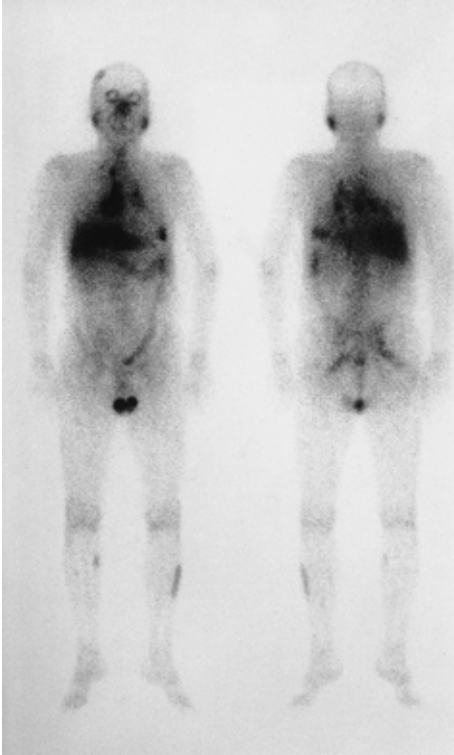


Fig. 4 Ga scintigram showing remarkable accumulations in the testes, hilum, mediastinum, left lower lung field, eyeballs, and parotid glands.

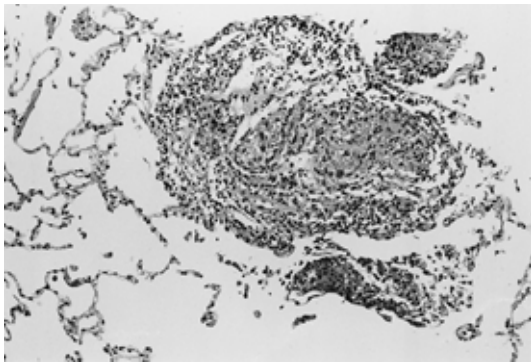


Fig. 5 Photomicrograph of a transbronchial lung biopsy specimen revealing noncaseating epithelioid granuloma.

サルコイドーシスの生殖器病変は、稀であり、剖検例で4~4.5%、臨床的に生殖器病変が診断される頻度は、0.5%程度であるとされており、また、その多くは精巣上体病変であり、精巣病変はさらに少ないとされている¹⁾。

サルコイドーシスの精巣病変の臨床報告例は、我々が検索し得た限りでは12例のみであり、その臨床的特徴をまとめると、以下の通りであった²⁾⁻¹³⁾。平均年齢26.8歳(5~41歳)、黒人10例、白人1例、不明1例と黒人

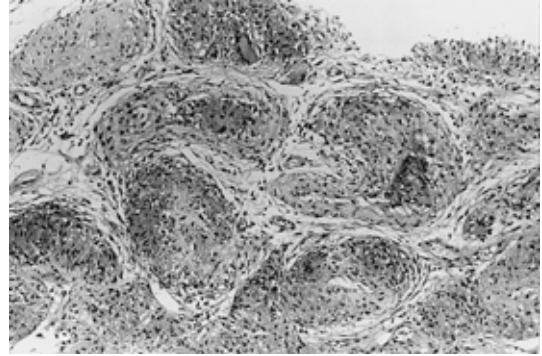


Fig. 6 Photomicrograph of a testicular biopsy specimen demonstrating numerous noncaseating epithelioid granulomas.

に多く、サルコイドーシス発症から精巣病変出現までの期間は平均22.1カ月(0~90カ月)で、サルコイドーシスの発症から、ある程度の期間を経て発症してくる例が多くみられ、右側3例、左側6例、両側3例と片側性の無痛性腫脹を呈する例が多く、精巣実質に病変を認めた例が8例、精巣被膜のみに病変を認めた例が4例であり、12例中7例が精巣上体にも病変を伴っていた。胸部X線上、12例中6例で肺野病変を認め、さらに手指骨、鼻骨、肘、膝関節等の骨関節病変や皮膚病変、全身リンパ節腫脹等の多彩な肺外病変を伴っている例が12例中8例と多くみられた。このように高率に肺野病変や皮膚、骨関節病変等の多彩な肺外病変を伴っている点が精巣サルコイドーシスの特徴と考えられる。精巣サルコイドーシスの診断・治療に関しては、7例で精巣悪性腫瘍の可能性を考慮し、精巣摘除術を施行されており、1例で精巣の腫瘍部分のみの切除を施行され、精巣サルコイドーシスと診断されていた。他の4例は精巣生検にて診断され、内2例はステロイド剤内服にて精巣病変の縮小を認め、1例は精巣サルコイドーシスの診断確定後、精巣悪性腫瘍の合併を否定するため、精巣摘除術を施行されていた。

本例においては、現時点でぶどう膜炎、精巣病変の他、Gaシンチにて耳下腺への取り込み、陰嚢超音波検査にて精巣上体の腫大を認めている以外に肺外病変は認められず、ステロイド剤全身投与は行っていないが、今後、従来の報告例のように、骨関節病変、皮膚病変が出現してくる可能性があり、注意深い経過観察が必要であると考えられる。また、報告例においては、精巣悪性腫瘍を疑われ、精巣摘除術を施行されている症例が多かったが、本例のように、精巣以外の臓器の生検で類上皮細胞肉芽腫が認められ、サルコイドーシスの診断が確定されている場合には、精巣サルコイドーシスを念頭に置ければ、精巣摘除術を行う前に、精巣生検にて診断が可能である

と考えられる。

以上，精巣病変を伴ったサルコイドーシスの1例を報告した。

謝辞：精巣サルコイドーシスの診断に御協力頂いた清水市立病院泌尿器科稲土博右先生，病理科森一郎先生に深謝します。

なお，本論文の要旨は第75回日本呼吸器学会東海地方会（1999年6月5日，名古屋市）において発表した。

文 献

- 1) Rudin L, Megalli M, Mesa-Tejada R: Genital sarcoidosis. *Urology* 1974; 3: 750-754.
- 2) Krauss L: Genital sarcoidosis: case report and review of the literature. *J Urol* 1958; 80: 367-370.
- 3) Hausefeld KF: Primary sarcoidosis of the scrotum: case report. *J Urol* 1958; 86: 269-272.
- 4) McGowan AJ Jr, Smith EH: Urological implications of sarcoidosis. *J Urol* 1967; 97: 1090-1093.
- 5) Chowdhury SD, Higgins PM: Sarcoid of the testis. *Brit J Urol* 1973; 45: 218-220.
- 6) Opal SM, Pittman DL, Hofeldt FD: Testicular sarcoidosis. *Am J Med* 1979; 67: 147-150.
- 7) Torrington KG, Lewis PG, Tellis CJ, et al: Systemic sarcoidosis presenting with a testicular nodule. *South Med J* 1979; 72: 1001-1003.
- 8) Wees SJ: Testicular sarcoidosis. *South Med J* 1981; 74: 255.
- 9) Amenta PS, Gonick P, Katz SM: Sarcoidosis of testis and epididymis. *Urology* 1981; 17: 616-617.
- 10) Seaworth JF, Davis SJ, Donovan WN: Aggressive diagnostic approach indicated in testicular sarcoidosis. *Urology* 1983; 21: 396-398.
- 11) McWilliams WA, Abramowitz L, Tiamson EM: Epididymal sarcoidosis: case report and review. *J Urol* 1983; 130: 1201-1203.
- 12) Hackney Jr RL, Jackson AG, Worrell RG: Sarcoidosis of the testis: a case report. *J Natl Med Ass* 1986; 78: 63-68.
- 13) Haas GP, Badalament R, Wonnell DM, et al: Testicular sarcoidosis: case report and review of the literature. *J Urol* 1986; 135: 1254-1256.

Abstract

Testicular Sarcoidosis

Mikio Toyoshima^{1,2)}, Kingo Chida²⁾, Masafumi Masuda¹⁾, Toyohisa Eguchi¹⁾,
Shiro Imokawa²⁾, Yutaro Nakamura²⁾, Takafumi Suda²⁾
and Hirotohi Nakamura²⁾

¹⁾Internal Medicine, Shimizu Municipal Hospital, 1231 Miyakami, Shimizu 424-8636, Japan

²⁾Second Division, Department of Internal Medicine, Hamamatsu University School of Medicine, 3600 Handacho, Hamamatsu 431-3192, Japan

We report a rare case of testicular sarcoidosis. A 68-year-old man was admitted for detailed examination of uveitis and swelling of the testes. A chest X-ray film and computed tomographic scans disclosed ground-glass shadows in the lower fields of both lungs with mediastinal lymphadenopathy. Ga scintigram showed pronounced accumulations in the testes, hilum, and mediastinum. Transbronchial lung and testicular biopsy specimens demonstrated noncaseating epithelioid granulomas, thus confirming the diagnosis of sarcoidosis with testicular involvement. The patient was followed up without systemic steroids. A review of the world literature found only 12 reported cases of clinically evident testicular sarcoidosis.