

●症 例

陰嚢内腫瘍を伴ったサルコイドーシスの1例

山口 絵美^{a,b} 一安 秀範^a 永野 潤二^b
 岸 裕人^b 岩越 一^c 福田浩一郎^b

要旨：症例は32歳，男性．右陰嚢の無痛性腫瘍を主訴に熊本市市民病院泌尿器科紹介となり，精巣腫瘍を疑われ右高位精巣摘除術を施行された．組織学的に類上皮細胞肉芽腫を認め，サルコイドーシス（サ症）が疑われ呼吸器内科紹介となった．胸部CTでは，両側肺門・縦隔リンパ節腫大と肺内結節，気管支血管束の肥厚を認め，気管支鏡検査では，両側気管支粘膜に多数の結節を観察した．気管支，肺病変においても肉芽腫性病変を証明し，サ症と診断した．陰嚢内病変を伴うサ症はまれで，特に若年男性では悪性腫瘍との鑑別が重要なため，貴重な症例と考え報告する．

キーワード：サルコイドーシス，精巣上体，陰嚢内腫瘍

Sarcoidosis, Epididymis, Intrascrotal mass

緒 言

サ症は非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を特徴とした原因不明の全身性肉芽腫性疾患であり，特に肺病変やリンパ節病変，皮膚病変，眼病変の合併頻度が高い．一方で精巣上体などの生殖器に発症することは非常にまれであり，サ症患者全体の約0.2%，剖検例では約5%との報告もある¹⁾²⁾．陰嚢内の肉芽腫性病変を契機に発見され，気道病変も著明であった非常にまれなサ症を経験したため報告する．

症 例

患者：32歳，男性．

主訴：右陰嚢内腫瘍，乾性咳嗽．

家族歴：特記事項なし．粉塵曝露歴：なし．職業歴：無職．

喫煙歴：15本/日×9年．

現病歴：6ヶ月前より右陰嚢内腫瘍を自覚していたが，症状がないため放置していた．次第に増大傾向（鶏卵大）となったため，近医を受診し，精巣腫瘍を疑われて熊本

市民病院泌尿器科を紹介受診した．2ヶ月前から乾性咳嗽も出現しており，造影CT検査では縦隔リンパ節や肺内への転移，癌性リンパ管症を伴う精巣腫瘍やリンパ腫などが疑われたため，診断も兼ねて右高位精巣摘除術を施行された．その病理診断にて乾酪壊死を伴わない類上皮細胞肉芽腫を認めており，Ziel-Neelsen染色，PAS染色，Grocott染色，Gram染色に染色性を示す菌は検出しなかったためサ症が疑われ，肺病変の精査目的で呼吸器内科に紹介となった．

入院時現症：身長160cm，体重54kg，体温36.5℃，SpO₂98%（室内気），呼吸回数17回/min，血圧106/64mmHg，脈拍80/min・整，表在リンパ節腫張なし，心音は整，胸部でラ音は聴取せず，皮疹なし，皮下結節は触知せず．右陰嚢は鶏卵大に腫大していたが，熱感や圧痛はなく，可動性のない表面不整な腫瘍性病変を認めた．

入院時検査所見：血液検査では血算に異常なく，生化学検査では，肝機能値や血清カルシウム値は正常範囲内であったが，ACEは25.4IU/L（正常値：8.3～21IU/L），可溶性IL-2レセプターは912U/ml（正常値：122～491U/ml）といずれも軽度上昇を示した．ツベルクリン反応は陰性で，眼病変や心病変を疑う異常所見はなく，呼吸機能検査も正常範囲内であった（表1）．胸部X線写真（図1）では，両側肺門・縦隔リンパ節腫大と両側上肺野優位に浸潤影とすりガラス様陰影を認めており，サ症病期分類はII期であった．胸部CT写真（図2）では，両側肺門，縦隔リンパ節腫大に加えて，両側上肺野優位に気管支血管束が肥厚していた．腹部CTでは，脾腫はなく，上腹部リンパ節や肝門部血管周囲のリンパ節は腫

連絡先：山口 絵美

〒860-8556 熊本市中央区本荘1-1-1

^a熊本大学医学部附属病院呼吸器内科

^b熊本市市民病院呼吸器内科

^c同 感染症内科

(E-mail: emi1320@hotmail.com)

(Received 3 Jan 2014/Accepted 6 Mar 2014)

表 1 入院時検査所見

| Hematology | | Serology | | BALF (Rt.B ⁵ b) | |
|--------------|----------------------------|----------------------------|------------|----------------------------|---------------------------|
| WBC | 8,000/ml | CRP | 0.72 mg/dl | Recovery rate | 70% (105 ml/150 ml) |
| RBC | 516 × 10 ⁴ /ml | S-IL2r | 912 U/ml | TCC | 3.9 × 10 ⁵ /ml |
| Hgb | 16.1 g/dl | ACE | 25.4 | Macrophage | 72.2% |
| Hct | 45.7% | AFP | 1.6 ng/ml | Eosinophil | 0 |
| PLT | 24.3 × 10 ⁴ /ml | HCGβ | 0.1 ng/ml | Lymphocyte | 22.5% |
| | | | | Neutrophil | 5.3% |
| Biochemistry | | Plummonary function test | | Lymphocyte subsets | |
| TP | 7.7 g/dl | VC | 4.21 L | CD4 | 80.3% |
| Alb | 4.2 g/dl | %VC | 98.5% | CD8 | 14.3% |
| Ca | 9.8 mEq/L | FEV1.0 | 3.41 L | CD4/CD8 | 5.6 |
| BUN | 14.6 mg/dl | FEV1.0% | 80.8% | | |
| Cre | 0.66 mg/dl | | | Asid-fast bacteria | |
| AST | 25 U/L | PPD skin test | (-) | Smear | (-) |
| ALT | 22 U/L | | | Tbc-PCR | (-) |
| LDH | 172 U/L | Holter electrocardiography | n.p. | MAC-PCR | (-) |
| | | | | Culture | (-) |

n.p. : nothing particular, TCC : total cell count, PPD : purified protein derivative.



図 1 胸部単純 X 線写真. 側肺門部リンパ節腫脹と両側上肺野優位に斑状影を認めた.

大していたが、腸骨動脈周囲や鼠径部のリンパ節は腫脹していなかった。

陰嚢内病変に関しては、エコーで内部不均一なモザイク状の腫瘤とその周囲に液体貯留を認めていた。MRIの画像所見(図 3A)としては、精巣上体領域に線維成分が主体の病変が疑われたが、辺縁が不整で、陰嚢壁との境界が一部で不鮮明であり、周囲組織への浸潤が疑われ、悪性を否定できない所見であった。AFP 1.6 ng/ml, hCG 0.1 ng/ml, LDH 172 IU/L と精巣腫瘍の腫瘍マーカーは、いずれも正常範囲内であった(表 1)。

右陰嚢の高位精巣摘出術の肉眼所見としては、右精巣上体領域に 4.4 × 3.4 × 2.2 cm 大の白色で充実性硬の腫瘤

性病変があり、その病理像は、肉芽腫病変と結合組織が主体(図 3B)ではあるが、正常腺構造も残存していた。肉眼的には腫瘤性病変を指摘できなかった右精巣内にも、びまん性に肉芽腫性病変を認めた。左陰嚢の針生検の組織では肉芽腫性病変を指摘できなかった。なお、いずれの組織切片においても悪性所見は観察されなかった。

気管支鏡検査では、気管粘膜の毛細血管怒張と両側気管支に多発する黄白色の小結節が観察され、粘膜は全周性に浮腫状であった。右 B⁵b からの気管支肺胞洗浄、右上葉入口部の気管支粘膜の結節性病変の生検、右 B³a と右 B⁸a より経気管支肺生検を施行した。気管支肺胞洗浄液では、リンパ球分画の上昇、CD4/CD8 比の上昇を認めており、サ症に矛盾しない結果であった(表 1)。気管支粘膜の結節性病変と経気管支肺生検のいずれの組織においても、非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認めた。

臨床経過：陰嚢内病変(精巣上体)と気管支、肺病変の 2 臓器から非乾酪性肉芽腫性病変を証明し、組織診断群としてサ症の診断に至った³⁾。治療に関しては、呼吸器症状に乏しく呼吸機能検査も正常範囲内であり、ステロイド全身投与の適応はないと判断し、経過観察とした。その後 1 年の経過では、陰嚢内病変をはじめとして肉芽腫性病変の再発はなく、縦隔・肺門・腹部リンパ節腫大は縮小傾向である。気管支血管束の肥厚は軽度残存しているものの、肺内病変を含めて消退傾向にあり、乾性咳嗽の減少を自覚している。一方で ACE 値は著変なく、やや高値が持続している。

考 察

サ症は原因不明の全身性肉芽腫性疾患であり、おもな

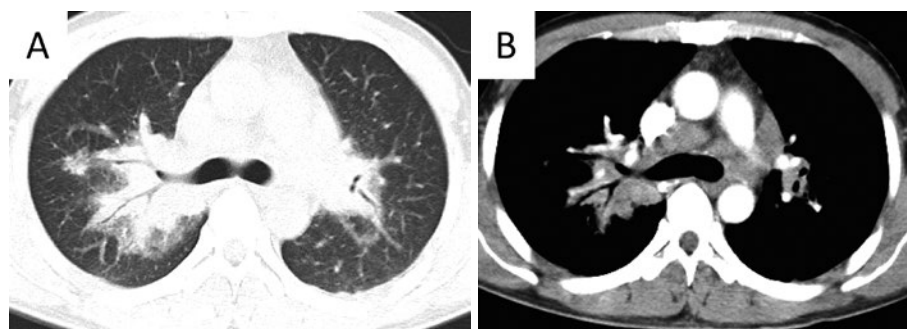


図2 胸部造影CT。(A) 気管支血管束の肥厚や周囲に微細粒状影の散布を伴う多発結節影、すりガラス様陰影を認めた。(B) 縦隔・両側肺門に融合傾向のないリンパ節の腫脹を認めた。

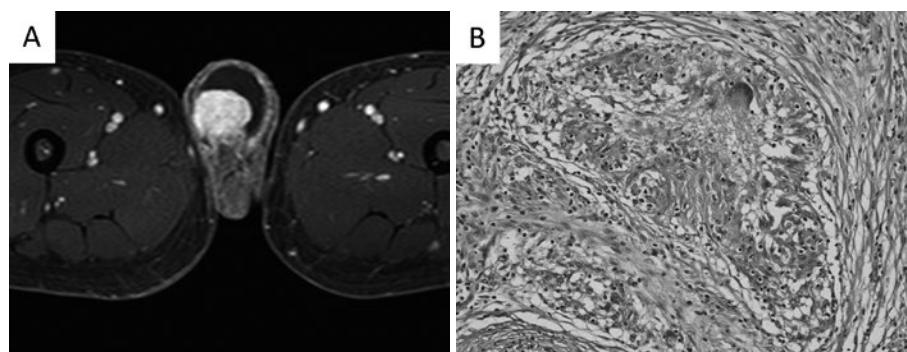


図3 (A) 骨盤造影MRI。右精巣頭側に分葉状の30 mm大の腫瘤性病変があり、T2強調画像で内部が均一に低信号で、造影T1強調画像では徐々に強く造影された。(B) 右高位精巣摘除術の摘出標本。結合組織の増生を伴う多数の類上皮肉芽腫を認めた。

病変部位は肺、リンパ節、眼、皮膚で、それ以外の臓器に病変が認められるのは比較的まれである。特に陰嚢内に発症することは少なく¹⁾、Rickerらの報告では300例(男性285例/女性15例)中1例のみに観察されている²⁾。岩崎らの、我が国における陰嚢内病変を認めたサ症患者13例の臨床的検討では⁴⁾、病変部位は精巣上部のみであった症例が78%であったのに対し、本症例では精巣上部に加え、精巣内や周囲軟部組織(陰嚢壁)にもびまん性に肉芽腫病変を認めていた。主訴が無痛性の陰嚢腫大であること、肺病変がI~II期に多いという点はこれまでの報告と一致していた。本症例ではガリウムシンチグラフィは施行していないが、岩崎らの報告によれば⁴⁾、陰嚢内結節を認めていた症例は、全例において陽性所見を認めており、サ症において陰嚢内病変の有無をみるスクリーニングとしては有用であると思われる。

本症例は、青年期にみられた増大傾向を示す陰嚢内腫瘍性病変であり、精巣腫瘍との鑑別が問題となった。精巣腫瘍を疑う場合は、遠隔転移が疑われても、高位精巣摘除術を行って組織診断を行う⁵⁾。本症例では、上腹部リンパ節、縦隔リンパ節への遠隔転移や癌性リンパ管症

を伴った精巣腫瘍が疑われていたが、精巣の所属リンパ節である大動脈分岐部以下の腸骨動脈周囲や、下大静脈周囲のリンパ節腫脹は認めていなかった。悪性精巣腫瘍の大半を占める胚細胞腫では、胸管を介して転移した場合には、直接左鎖骨上窩リンパ節や肺内転移を認める場合もあるものの、通常は所属リンパ節から転移するとされている⁶⁾。本症例においては、肉芽腫性疾患も考慮して術中迅速生検や術前の肺病変精査なども検討すべきであったかもしれない。

しかし、精巣胚細胞腫瘍患者が肉芽腫病変を併発するのは正常男性に比較して10倍多いとの報告や⁷⁾、精巣腫瘍は固形腫瘍のなかでも特にサ症との関連性が高い⁸⁾など、サ症と悪性疾患との関連性に関しては多数報告がある。また、佐々木らの精巣上部サルコイドーシス18例の症例検討でも、診断目的にて88%の患者で何らかの外科的生検が行われており、サ症と診断がついていた患者においても、陰嚢内病変が出現した場合には悪性疾患を除外する目的にて94%で何らかの外科的生検を施行されていた⁹⁾。

本症例では術後2年経過しており、その経過で悪性腫

瘍を疑う所見は認めていないものの、今後の悪性疾患の出現の有無について注意深く経過を追う必要がある。

陰嚢内サルコイドーシスの腫瘍は、エコーでは低エコー¹⁰⁾¹¹⁾、MRIではT2強調画像で低信号、T1強調画像で造影効果を示す¹¹⁾。また、精巣と精巣上体に同時期に多数の腫瘍が存在する場合はサ症の可能性が高くなるとされている¹¹⁾。精巣上体サルコイドーシスは、悪性腫瘍や精巣上体炎との鑑別が重要になる。精巣上体腫瘍の悪性を疑う目安として、腫瘍の大きさ(1.5 cm以上)と血流豊富なエコー所見を提示している報告もある¹²⁾が、エコーだけでは良悪性の鑑別は困難¹⁰⁾ともいわれている。実際に本症例も、1.5 cm以上の大きさであり、かつ腫瘍の辺縁が不整であったこと、陰嚢壁との境界が不明瞭であったことから悪性疾患が否定できなかった。

精巣腫瘍に悪性腫瘍の割合が高いのに対し、陰嚢内の精巣外腫瘍病変や精巣上体腫瘍は良性腫瘍の割合が高い¹⁰⁾¹²⁾とされており、画像所見で精巣病変か精巣外病変かの鑑別を行うことは重要であると考えられる。

サ症は多様性に富んだ臨床像や臨床経過を示し、自然軽快する可能性もあるため、治療適応の有無の判断が重要である。高度の臓器機能障害を伴う場合(眼症状/神経病変/呼吸機能障害/腎障害など)や生命の予後が危ぶまれる症例(不整脈など)においては全身ステロイド投与が第一選択となる。陰嚢内病変が出現した場合は、無精子症や精子減少症により不妊になることも報告されており、その際にはステロイド投与の適応となる。中等量(40~60 mg/日)以上のステロイド導入例では治療に反応して精子量の増加を認めているが、ステロイド漸減時に再燃し、再増量が必要になった症例報告もある¹³⁾¹⁴⁾。

サ症における陰嚢内病変の頻度は非常にまれであるが、特に若年者の場合は妊孕性の問題も生じてくるため、陰嚢内腫瘍を認めた場合には、精巣腫瘍などの悪性疾患に加え良性疾患であるサ症の鑑別も念頭に置く必要があり、教訓的な症例として報告した。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示: 本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) Rao PK, et al. Genitourinary sarcoidosis. *Rev Urol* 2009; 11: 108-13.
- 2) Ricker W, et al. Sarcoidosis; a clinicopathologic review of 300 cases, including 22 autopsies. *Am J Clin Pathol* 1949; 19: 725-49.
- 3) サルコイドーシス診断基準と診断の手引き—2006. サルコイドーシス 2007; 27: 81-101.
- 4) 岩崎貴裕, 他. 精巣と精巣上体病変を有したサルコイドーシスの1例—本邦報告例の臨床的検討—. *日呼吸会誌* 2009; 47: 631-5.
- 5) 日本泌尿器科学会. 精巣腫瘍診療ガイドライン 2009年版. 2009.
- 6) Bosl GJ, et al. Testicular germ-cell cancer. *N Engl J Med* 1997; 337: 242-54.
- 7) Jeurkar N, et al. Granulomatosis and testicular germ cell tumors. *Urology* 2012; 80: 1303-6.
- 8) Cohen PR, et al. Sarcoidosis and malignancy. *Clin Dermatol* 2007; 25: 326-33.
- 9) 佐々木豪, 他. 精巣上体サルコイドーシスの1例. *泌紀* 2009; 55: 645-9.
- 10) Frates MC, et al. Solid extratesticular masses evaluated with sonography: pathologic correlation. *Radiology* 1997; 204: 43-6.
- 11) Koyama T, et al. Radiologic manifestations of sarcoidosis in various organs. *Radiographics* 2004; 24: 87-104.
- 12) Alleman WG, et al. Benign and malignant epididymal masses evaluated with scrotal sonography: clinical and pathologic review of 85 patients. *J Ultrasound Med* 2008; 27: 1195-202.
- 13) Kovac JR, et al. Diagnosis and treatment of azoospermia resulting from testicular sarcoidosis. *J Androl* 2012; 33: 162-6.
- 14) Canguven O, et al. Corticosteroid therapy improves the outcome of semen analysis in an oligozoospermic patient with epididymal sarcoidosis. *Korean J Urol* 2013; 54: 558-60.

Abstract**A case of sarcoidosis with intrascrotal lesions**

Emi Yamaguchi^{a,b}, Hidenori Ichiyasu^a, Junji Nagano^b, Hiroto Kishi^b,
Hajime Iwagoe^c and Koichiro Fukuda^b

^aDepartment of Respiratory Medicine, Kumamoto University Hospital

^bDepartment of Respiratory Medicine, Kumamoto City Hospital

^cDepartment of Infectious Disease Medicine, Kumamoto City Hospital

A 32-year-old man was admitted to our urology department for an examination of an enlarged right-intra-scrotal mass. Testicular cancer with intrapulmonary metastasis was suspected. A right radical inguinal orchiectomy was performed for the purpose of therapeutic diagnosis. Histopathological findings of the epididymal tissue and testis revealed granulomas without evidence of neoplasm. A computed tomographic scan of the chest showed bilateral hilar and mediastinal lymphadenopathy with multiple micronodules and thickening of the bronchovascular bundles in both upper lung fields. Bronchoscopy showed mucosal irregularity, small nodules, and capillary network at the trachea and bronchi. Histopathology of bronchial lesion and lung nodules also showed noncaseating epithelioid cell granuloma. Systemic sarcoidosis was diagnosed on the basis of the findings. Although sarcoidosis very rarely presents with intrascrotal lesions, steps must be taken to distinguish between sarcoidosis and testicular malignancy, especially in young men.