

症 例

陰嚢内発生脂肪芽腫の6歳男児の手術例

内山 昌則¹⁾, 村田 大樹¹⁾, 酒井 剛²⁾, 矢尾 剛夫²⁾

要 旨

6歳男児の陰嚢内腫瘍の摘除術を行い、組織は脂肪芽腫であった。脂肪芽腫は主に3歳未満の乳幼児の皮下腫瘍として発生し、部位としては臀部も含めた下肢、胸壁・腹壁を含めた体幹部、頭頸部、腋窩が多く、陰嚢内発生は非常にまれであった。本例も含め本邦で小児脂肪芽腫は158例の報告があり、うち鼠径・陰部発生は16例報告され、その内で陰嚢部発生は4例（7歳；陰嚢内、10か月；傍陰嚢、生後9日目；副陰嚢、本例；陰嚢内）であり、厳密な意味での陰嚢内発生は2例であった。

Key Words: 脂肪芽腫, 陰嚢腫瘍, 軟部腫瘍, 皮下腫瘍, 小児

I はじめに

小児良性軟部腫瘍のうち脂肪芽腫は比較的まれな疾患で、3歳以下の軟部腫瘍の多くを占め治療は切除術がなされる¹⁻⁶⁾。発生部位としては臀部を含めた下肢、体幹、頭頸部、上肢の順に多いと報告されているが¹⁻⁶⁾、稀な陰嚢内発生例を経験したので報告する。

II 症 例

症例：6歳男児

主訴：左陰嚢の腫大

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：3歳頃より近医で左陰嚢水腫といわれていたが放置していた。1か月前より増大してきたため心配となり当院泌尿器科を受診した所、ヘルニアを疑われ当科を紹介された。

現症：陰嚢上部に腫瘤性病変あり弾性軟で鼠径部

に移動する感触があった（図1）。腹部症状はなく陰嚢腫瘍が還納されることもなく疼痛も訴えなかった。

検査所見：エコー検査では左陰嚢内に脂肪組織と同程度の高エコーの充実性腫瘤を認め、圧迫で鼠径部へずれる所見があった（図2）。ヘルニア嚢内への大網の脱出も考慮されたが、脂肪性の腫瘤と腹腔内とは明らかな連続性はなかった。

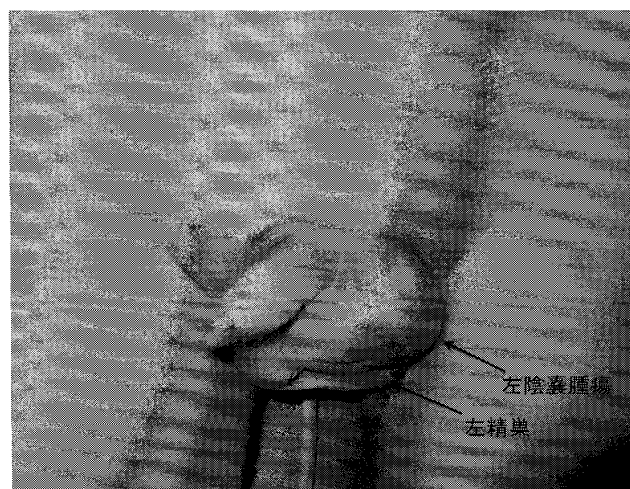


図1

局所所見、左陰嚢に腫瘍があり膨隆している。

1) 新潟県立中央病院小児外科

2) 同 病理

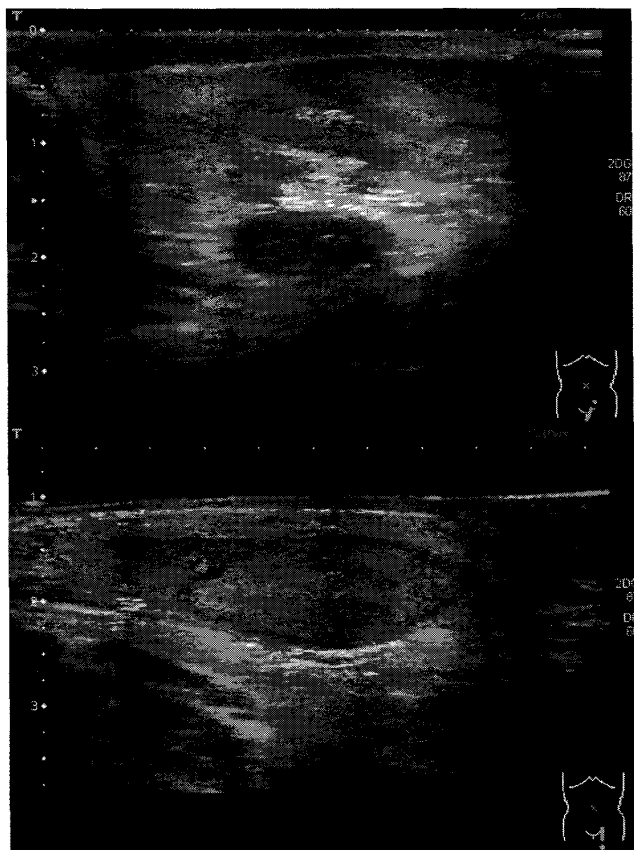


図2 鼠径部・陰部・陰嚢部エコー

陰嚢から会陰にかけて脂肪組織と同程度の高エコーの充実性腫瘍があり，分葉し隔壁がみられる．鼠径管には連続していない．

術前診断：左鼠径ヘルニア，陰嚢腫瘍として手術した．

手術所見：通常の鼠径ヘルニア手術のように鼠径管を開き精索にテープを掛け，ヘルニア嚢を検索した．陰嚢に連続するようなヘルニア嚢はなく腹膜鞘状突起の遺残程度のヘルニア嚢を開き腹腔を検索したが，大網の突出はなかった．高位結紮を行った．鼠径管内に陰嚢内腫瘍に連続するような構造物はなかった．そこで陰嚢皮膚より切開を加え，肉様膜を分けていくと精巣がみいだされた．精巣構造とは別に結合組織線維で包まれた弾性軟の腫瘍をみとめ黄褐色であった（図3）．これは精巣や副精巣さらにその動脈静脈とは連続性を持たず恥骨に向っていた．尿道にフォーリーカテーテルを挿入し触診で確認したが，腫瘍は尿道周囲組織には関与していなかった．この陰嚢腫瘍を周囲から剥離し被膜に包まれたまま摘除した．根部は

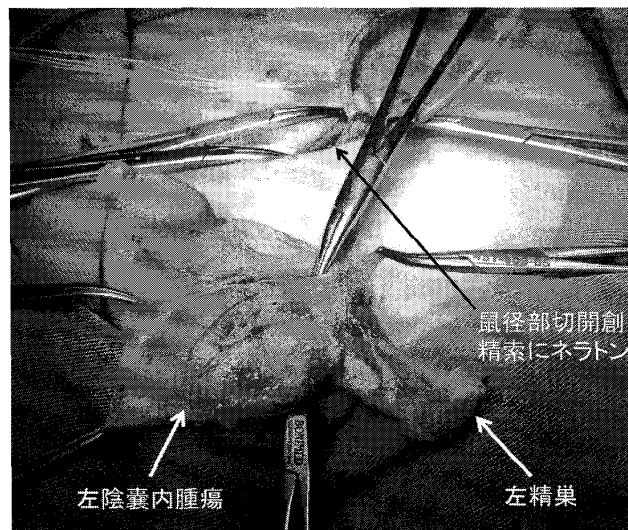


図3 手術所見

左陰嚢内に腫瘍があり，精巣・精索組織と剥離し被膜に包まれたまま摘除した．

恥骨の骨膜近くに付着していた．左精巣固定術を行ない陰嚢皮膚は埋没縫合した．鼠径管の筋膜を縫合し皮下を埋没縫合した．

病理所見：腫瘍は $6 \times 4 \times 3$ cm で被膜に包まれた分葉した脂肪組織状で断面は白黄色であった（図4）．病理では線維性被膜に覆われ粘液腫状の基質を有し脂肪芽細胞を含む脂肪細胞の増殖がみられ脂肪芽腫と診断された（図5）．

術後経過：良好で術後5日目に退院した．術後2年3か月で再発所見はない．

Ⅲ 考 察

脂肪芽腫は小児良性軟部腫瘍として比較的まれな疾患であるが，3歳以下の皮下軟部腫瘍の多くを占めその報告例も増加している¹⁻⁶⁾．我々が調べた限り本邦で2008年まで158例が報告されている．脂肪芽腫の臨床的特徴として症例の男女比は2:1程度と男児に多く，表面の皮膚には変化はなく皮下腫瘍として発見されるが急速に増大する傾向にある．治療例の90%は3歳以下と報告されている．発生部位では頭頸部が20%，肩部を含めた上肢が10%，腋窩5%，胸壁・腹壁を含めた体幹部が20%，臀部を含めた下肢が30%程度と報告されているが，腹腔内腸間膜や後腹膜，鼠径・陰部例も報告されている¹⁻¹⁴⁾．多発性，びまん性病変を呈することがあり脂肪芽腫症といわ

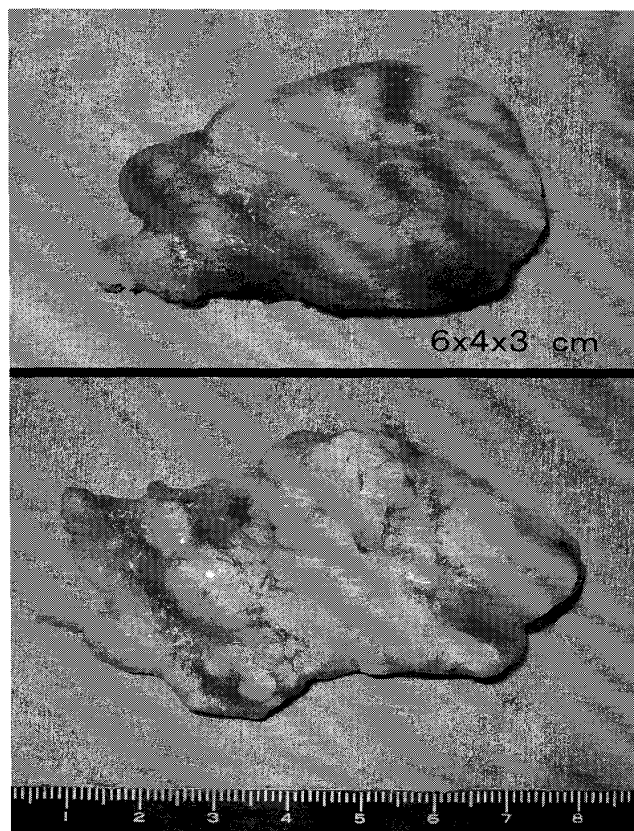


図4 腫瘍切除標本

線維性被膜に包まれた黄褐色腫瘍，剖面では白黄色の脂肪組織状で分葉している。

れる⁵⁻⁹⁾。

エコー検査では周辺脂肪組織と同程度の低吸収陰影で，CT検査では脂肪と同程度の低吸収域でエンハンスはされない^{2-6,15)}。MRI検査ではT1およびT2強調で高信号として描出され皮下脂肪組織とはほぼ等信号で，粘液腫状の線維成分の多い所ではT1強調で低信号，T2強調で高信号と報告され，被膜状辺縁が明瞭で分葉多房性で隔壁をもつ内部構造が多いといわれている^{2,4-6,15)}。脂肪腫，乳幼児線維性過誤腫，脂肪肉腫，脂肪線維腫症などが小児の皮下軟部の脂肪・線維性腫瘍の鑑別としてあるが⁴⁻⁹⁾，術前診断は難しく最終的には生検ないし切除標本での病理診断による¹⁻¹⁴⁾。

肉眼的には剖面が灰白黄色で組織では脂肪組織と線維成分が混在しているが，線維性隔壁を持つ分葉構造がみられ幼若脂肪細胞からなり毛細血管が多く紡錘状の未熟間葉細胞も見られる。空胞状，印環状，星状の脂肪芽細胞からなるが成熟脂肪細胞もみられ脂肪腫への移行みられる¹⁻⁹⁾。脂肪肉

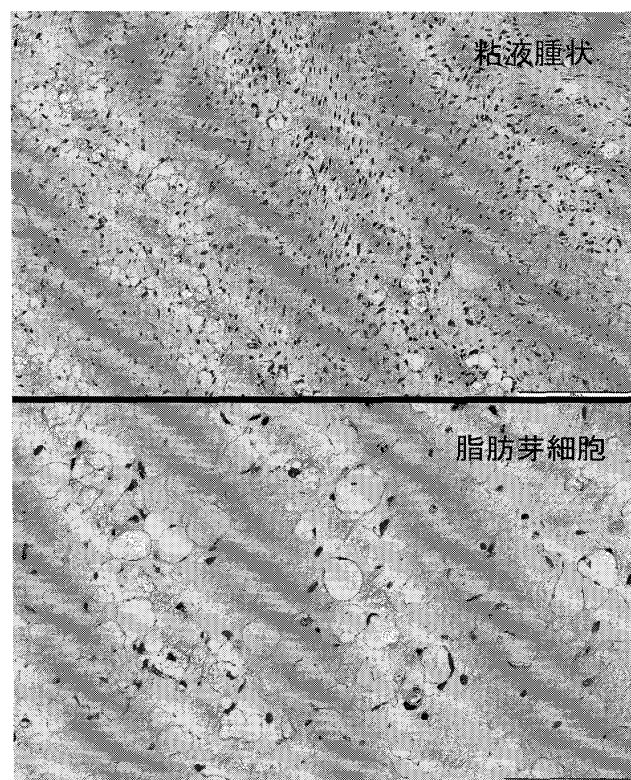


図5 病理組織所見

粘液腫状の基質を有し，脂肪芽腫を含む脂肪細胞の増殖がみられ，脂肪芽腫の診断。

腫との鑑別では肉腫は分葉構造を欠き種々の成熟段階の脂肪細胞は出現せず核分裂像や異型性を持ち，また10歳未満の小児ではまれと報告されている^{4-9,14)}。

治療は腫瘍の摘除術が原則であり手術時年齢では1歳未満が全体の40%，2歳未満が70%，3歳未満が全体の85～90%を占める¹⁻¹⁴⁾。切除後の化学療法は行わず予後良好で転移はきたさないが，局所再発は6～15%程度と報告されている³⁻⁷⁾。再発率の高さはその施設での症例数に占める脂肪芽腫症の多さによると分析されているが⁶⁾，特に不完全切除例，四肢などの骨筋膜に接した例，びまん性例では再発をきたすことがあると報告されている^{1,3-7)}。したがって通常例で術後少なくとも3年の経過観察を行うが，上記再発危険因子のある例ではより長期の経過観察が勧められている⁶⁾。

近藤ら³⁾は発生部位の明らかな92例中で鼠径部3例・陰部4例(7.6%)と報告した。この集

計例も含めそれ以降で 2008 年までの報告例を集計し、調べた小児の本疾患 158 例中、鼠径部・陰部発生例は 16 例 (10.1%) 報告されていたが、そのうち陰嚢部発生は 4 例とまれであり (7 歳; 陰嚢内¹⁰⁾, 10 か月; 傍陰嚢¹¹⁾, 生後 9 日目; 副陰嚢¹²⁾, 6 歳; 本例), 厳密な意味での陰嚢内発生は 2 例であった。欧米でも鼠径・陰部発生例は 85 例中 4 例 (4.7%)⁷⁾, 186 例中 20 例 (10.8%)⁶⁾と報告され、さらに陰嚢内発生は今まで 6 例の報告とまれであった⁷⁻⁹⁾。

鼠径・陰部発症の本症は腫瘤として触知されていても、鼠径ヘルニアや水腫として経過をみられることもあると考えられる。還納しない鼠径部・陰部腫瘤では本症も念頭におき、エコー検査による画像診断を行い、その所見によっては CT や MRI 検査などによる診断を行い、組織検索・切除術を含めた治療計画をたてる必要があると考えられた。

文 献

- 1) 矢内俊裕, 久保雅子: 下腿部 lipoblastoma の再発例. 小児がん, 34: 265-269, 1997
- 2) 中谷佳弘, 他: 脂肪芽腫 8 例の検討: 画像診断の特徴. 日小外会誌, 36: 561, 2000
- 3) 近藤章生, 他: 手背に生じた脂肪芽腫の 1 例. 臨皮, 58: 843-845, 2004
- 4) 内山昌則, 他: 小児良性軟部腫瘍の脂肪芽腫 2 例と乳幼児線維性過誤腫 1 例 - 特徴的所見と治療の比較検討. 小児外科, 39: 1111-1118, 2007
- 5) MacVay MR, et al: Surgical management of lipoblastoma. J Pediatr Surg, 41: 1067-1071, 2006
- 6) Speer AL, et al: Contemporary management of lipoblastoma. J Pediatr Surg, 43: 1295-1300, 2008
- 7) Arda IS, et al: A case of benign intrascrotal lipoblastoma clinically mimicking testicular torsion and review of the literature. J Pediatr Surg, 28: 259-261, 1993
- 8) Dy JS, et al: Benign intrascrotal lipoblastoma in a child. Urology, 70: 372. e1-372. e2, 2007
- 9) Del Sordo R, et al: Intrascrotal lipoblastoma: a case report and review of the literature. J Pediatr Surg, 42: E9-E11, 2007
- 10) 吉川哲夫, 他: 陰嚢内脂肪芽腫の 1 例. 日泌会誌, 78: 2223, 1987
- 11) 大塩猛人, 他: 右傍陰嚢に発生した小児脂肪芽腫の 1 例. J. J. P. U. 8: 159-162, 1999
- 12) Ito Mitsuhiro, et al: New phenotype of accessory scrotum with perineal lipoblastoma: Coexistence of midperineal and lateral accessory scrotums. Int J Urol, 11: 125-127, 2004
- 13) 小池能宣, 他: 再発し再切除を要した年長児の右鼠径部脂肪芽腫の 1 例. 小児がん, 42: 638, 2005
- 14) 小高明雄, 他: 左鼠径部から発生して急速に増大した脂肪芽腫の 1 男児例. 日臨外会誌, 69: 2418-2422, 2008
- 15) 青木隆敏: 脂肪を含む軟部腫瘍の画像診断. 画像診断, 26: 358-368, 2006

Intrascrotal lipoblastoma in a 6-year-old boy: a case report and review of literature.

Masanori Uchiyama¹⁾, Hiroki Murata¹⁾, Tsuyoshi Sakai²⁾, and Tsuyoshi Yao²⁾

1) *Pediatric Surgery, Niigata Prefectural Central Hospital*

2) *Pathology, the same.*

A 6-year-old boy presented with a solid, soft, and painless mass in the left scrotum. Operative findings showed a well-circumscribed, oval, yellowish, and elastic soft tumor measuring $6 \times 4 \times 3$ cm. The tumor was removed smoothly, separating it from the testis and spermatic cord. Histopathological examination gave a diagnosis of lipoblastoma. The patients status has been uneventful for 2 years 3 months after the surgery.

Lipoblastoma is a relatively rare pediatric soft tissue tumor, and is found mostly in patients under 3-years-old. So far literatures of 158 pediatric cases of lipoblastoma within our country have been reviewed. In 16 cases, including present case, tumors appeared in the inguinal and pudendal region, and scrotal lesions were found in 4 of the cases (7-year-old;intrascrotal, 10-month-old;parascrotal, 9-day-old; accessory scrotal, 6-year-old; present case) . Scrotal lesions were very rare and the present case was the second case of intrascrotal lipoblastoma in the strict sense of the scrotum.

Key Words: lipoblastoma, scrotal tumor, soft tissue tumor, subcutaneous tumor, child