

症 例 報 告

自己凝血塊による塞栓術を施行した 外傷性 (High-flow type) 持続勃起症の小児例

近藤睦子, 河野達夫, 藤田和俊, 松井善一¹⁾, 佐藤裕之¹⁾, 西村 玄
東京都立小児総合医療センター 放射線科, 同 泌尿器科¹⁾

A case of pediatric post-traumatic (high-flow type) priapism treated with autologous blood embolization

Mutsuko Kondo, Tatsuo Kono, Kazutoshi Fujita
Zen-ichi Matsui¹⁾, Hiroyuki Sato¹⁾, Gen Nishimura

Department of Radiology and Urology¹⁾, Tokyo Metropolitan Children's Medical Center

Abstract Priapism is classified as either low-flow type or high-flow type. High-flow priapism (HFP) usually results from penile trauma injuring the wall of the cavernosal arteries with subsequent increased blood flow into the cavernous bodies. Low-flow priapism (LFP) is ischemic in nature, results from venous obstruction and is an emergency. Current data show that the incidence of priapism in the general population is low (0.5-0.9 cases per 100,000 person-years). LFP is the most common form of priapism, accounting for more than 85% of all priapism episodes. HFP is a rare condition in childhood. We present a case of a post-traumatic HFP in a 4-year-old boy treated with autologous blood clot embolization.

Keywords *high-flow priapism, color doppler ultrasonography, embolization, autologous blood clot*

はじめに

持続勃起症は、血行動態により high-flow type 持続勃起症 (high-flow priapism: 以下 HFP) と low-flow type 持続勃起症 (low-flow priapism: 以下 LFP) の2種に分類される¹⁻²⁰⁾。HFPは主に外傷により生じ、陰茎深動脈などが損傷を受け動静脈瘻 (動脈-海綿体洞瘻) が生じ、陰茎への動脈血が流入過剰となる¹⁻²⁰⁾。LFPは血液疾患などに続発し、静脈灌流が障害され虚血となるため緊急性が高い病態である^{1,2,4-15)}。本症は、10万人あたり0.5～

0.9人と稀な疾患で¹⁾、約85%がLFPといわれ¹⁻³⁾、小児のHFPは稀な疾患である^{1,2,4-5)}。

今回われわれは、自己凝血塊による動脈塞栓術を施行した外傷後HFPの小児例を経験したので報告する。

症 例

症例: 4歳男児

現病歴: 母親が陰茎の腫脹に気づき、近医を受診。翌日になっても症状が改善しないため、精査

原稿受付日: 2014年2月3日, 最終受付日: 2014年5月8日

別刷請求先: 〒183-8561 東京都府中市武蔵台2-8-29 東京都立小児医療センター

加療目的で当院へ紹介受診となった。受診の一週間ほど前に50cmほどの高さから落下し尻もちをついた外傷歴があった。

初診時現症：陰茎は緊満のない勃起を呈し、疼痛はなかった。陰嚢部に擦過傷、陰茎基部に約1cm大の紫斑を認めた。陰茎全体の発赤は認めなかった。

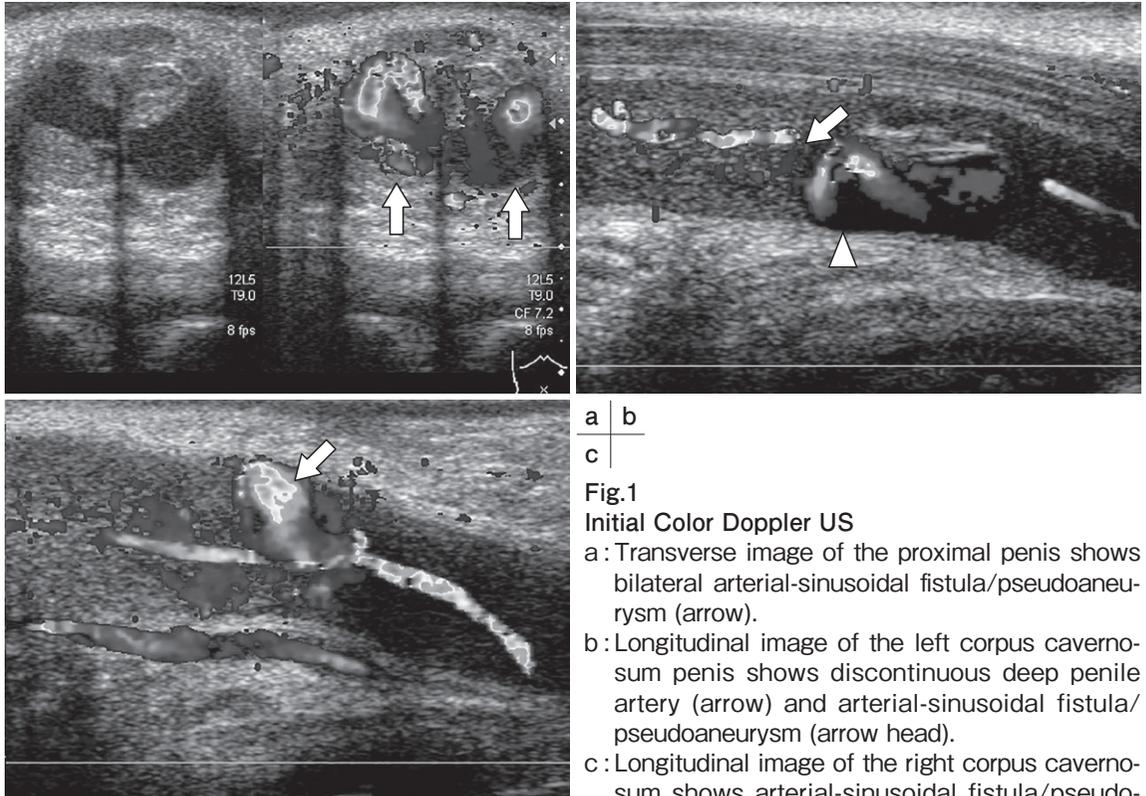
血液生化学的検査所見：特記すべき異常所見なし。
画像所見：初診時USにて、右側優位で陰茎海綿体に拍動性の血流増加を認めた。短軸像にて、両側陰茎根部に拍動性血流を伴う無エコー域を認めた (Fig.1a)。同長軸像にて、左陰茎深動脈は途絶し (Fig.1b矢印)、この途絶部に同様の無エコー域を認めた (Fig.1b矢頭)。右陰茎深動脈の連続性は保たれていたが (Fig.1c)、血管外に突出する同様の無エコー域を認めた (Fig.1c)、両側陰茎深動脈損傷に伴う動脈-海綿体瘻/仮性動脈瘤と診断した。

以上より外傷性HFPと診断した。

塞栓術が考慮され、翌日、血管造影の前に治療対象となる血管を絞り込むため可能な限り低線量で造影CTを施行した。矢状断像再構成画像にて、陰茎は勃起状態であることが確認できる (Fig.2a)。陰茎右根部に類円形濃染域を認め (Fig.2a矢印)、この病変周囲主体で右陰茎海綿体は淡い濃染を呈していた (Fig.2a, b矢印)。左根部にも類円形濃染像を認めた (Fig.2b矢頭)。動脈-海綿体瘻/仮性動脈瘤と診断した。CT angiography 3D再構成画像では、陰茎根部に動脈-海綿体瘻/仮性動脈瘤を認め (Fig.2c矢頭)、左内陰部動脈と連続性が疑われた (Fig.2c矢印)。

まずは圧迫治療が施行されたが、症状の改善を認めなかったため当院初診から約1か月後に、全身麻酔下で血管撮影および自己凝血塊による動脈塞栓術を施行した。

血管造影：CT所見より、左内陰部動脈分枝の関与が強く疑われたため、右鼠径部からアプローチし、左内腸骨動脈造影、選択的左内陰部動脈造影



a	b
c	

Fig.1

Initial Color Doppler US

- a: Transverse image of the proximal penis shows bilateral arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm (arrow).
- b: Longitudinal image of the left corpus cavernosum shows discontinuous deep penile artery (arrow) and arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm (arrow head).
- c: Longitudinal image of the right corpus cavernosum shows arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm (arrow).

を施行した。左陰茎深動脈は口径不整で狭窄性変化を呈し (Fig.3a 矢印), 同部から造影剤の血管外漏出像を認め楕円形貯留を呈した (Fig.3a 矢頭)。これと連続して左陰茎深動脈の遠位部が描出され, 直後に右側にも類円形の異常濃染を認めた (Fig.3a 曲矢印)。連続して逆行性に描出された右陰茎深動脈は口径不整であった。両側陰茎深動脈損傷, 動脈-海綿体瘻/仮性動脈瘤と診断した。

自己凝血塊を用い, 左陰茎深動脈の塞栓術を施行した。塞栓後の造影にて異常濃染像が消失したことを確認し (Fig.3b), 手技を終了した。

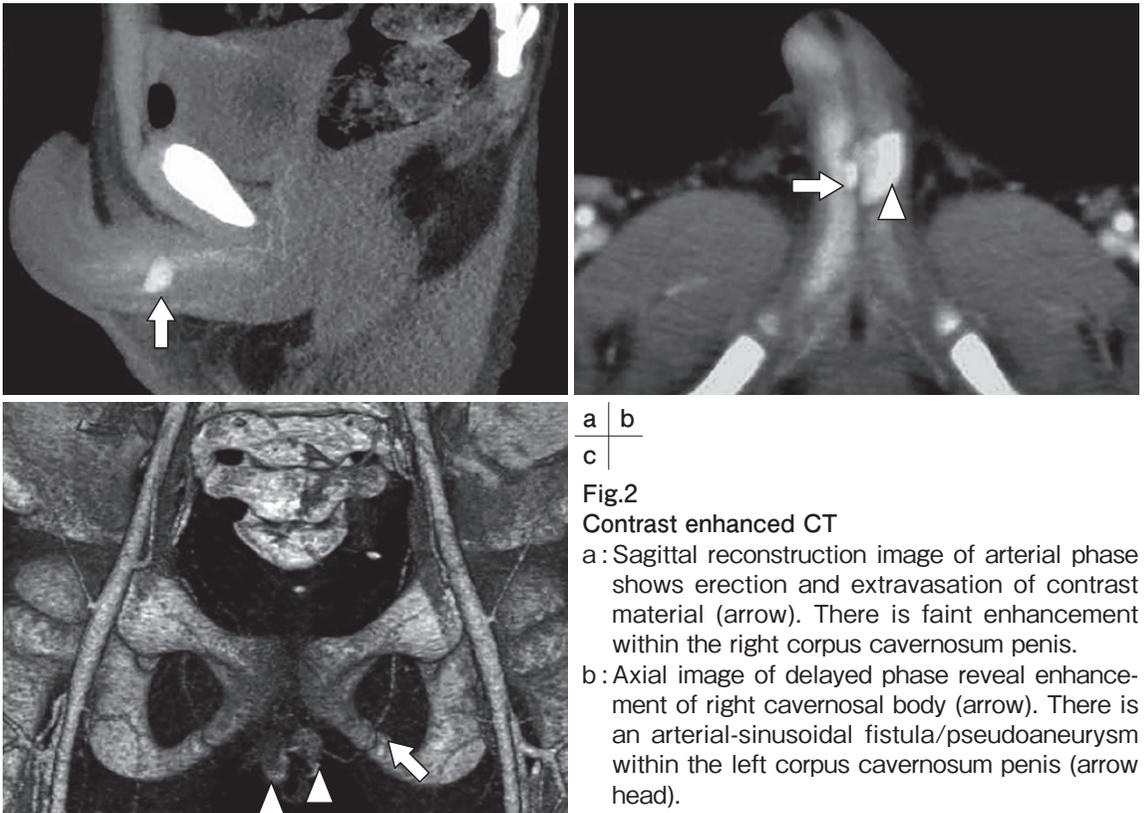
塞栓術後経過: 塞栓術翌日のUSでは, 陰茎海綿体の動脈-海綿体瘻/仮性動脈瘤所見は縮小傾向を呈したものの残存していたが, 塞栓術1か月後のUSでは (Fig.4a), 陰茎左根部病変はほぼ消失していた。右根部病変は縮小し不明瞭化していた。

塞栓術2か月後のUSにて, 再度陰茎左根部に

動脈-海綿体瘻/仮性動脈瘤を疑う所見 (Fig.4b 矢印) および右陰茎海綿体の血流増加所見を認め, 損傷血管の再開通を疑った。症状のわずかな再燃も認めため, 追加の塞栓術を考慮し, 血管造影を施行した。

右内腸骨動脈造影, 右内陰部動脈造影を施行したが明らかな異常濃染像は指摘できなかったため, 左内腸骨動脈造影, 左内陰部動脈造影, 左陰茎深動脈造影を施行した。いずれの造影でも明らかな異常濃染像は指摘できなかった。術前のUS所見にて, 右陰茎海綿体の血流増加所見を認めていたことから, 少量のゼラチンスポンジにて右陰茎深動脈の塞栓を施行した。

術後のUS所見にて, 左陰茎根部に無エコー1域が残存していたがカラードップラーにて内部に血流は確認できなかった (Fig.4c 矢印)。血栓化しているものと思われた。



a	b
c	

Fig.2

Contrast enhanced CT

a: Sagittal reconstruction image of arterial phase shows erection and extravasation of contrast material (arrow). There is faint enhancement within the right corpus cavernosum penis.

b: Axial image of delayed phase reveal enhancement of right cavernosal body (arrow). There is an arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm within the left corpus cavernosum penis (arrow head).

c: 3D-CT angiography shows bilateral arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysms fed by a left pudendal artery.

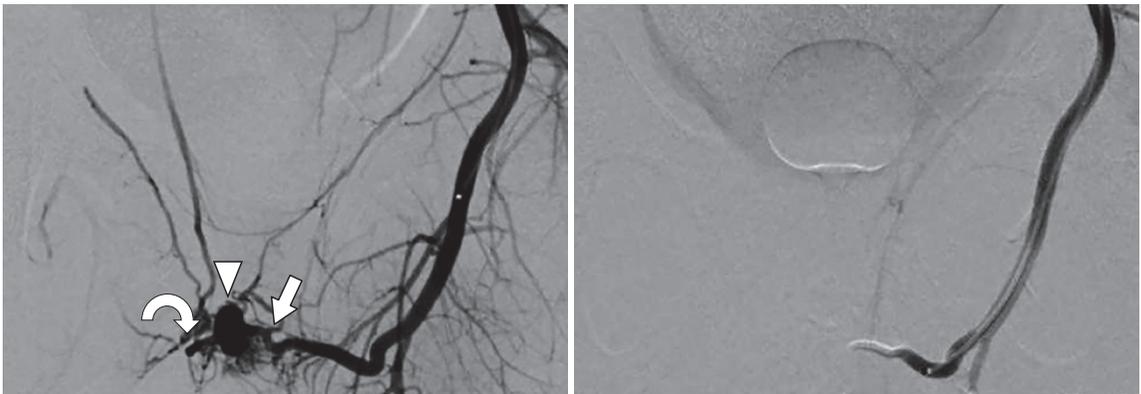
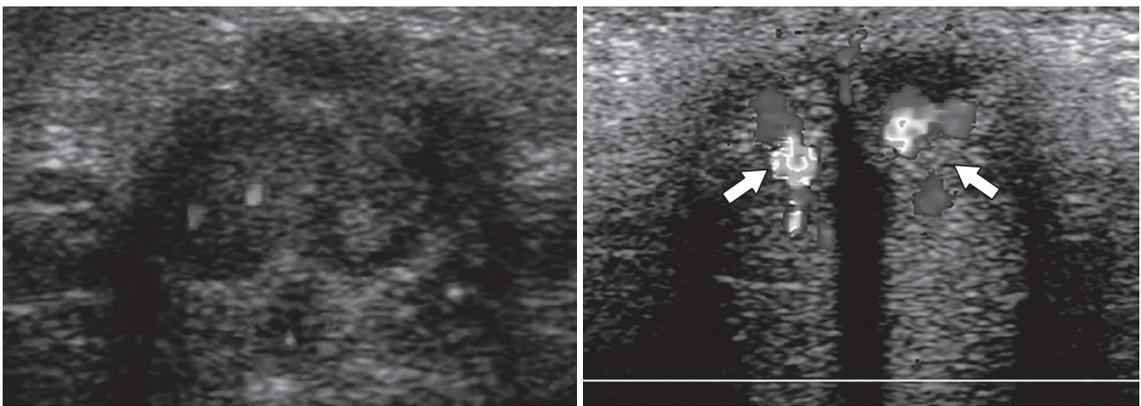


Fig.3 Angiography

a | b

- a : Selective angiogram of the internal pudendal artery reveals extravasation of contrast material (arrowhead) from the torn vessel (arrow), an appearance indicative of arterial laceration. There is another extravasation of contrast material by the left side lesion (curved arrow).
- b : After selective embolization with autologous blood clot, angiogram shows successful of occlusion of the fistula/ pseudoaneurysm.



a | b
c |

Fig.4

Transverse color doppler image of the proximal penis

- a : 1 month after the embolization :
Bilateral arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm have been diminished.
- b : 2 month after the embolization :
Recurrence of bilateral arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm is demonstrated.
- c : 3 month after the second embolization :
The right arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm have been diminished. There is thrombosed arterial-sinusoidal fistula/pseudoaneurysm within the left corpus cavernosum penis (arrow).



Table 1 Key findings in the evaluation of priapism

Findings	HF type	LF type
Physical examination	Incomplete erection, partially rigid the corpora cavernosa (soft and compressive)	Complete erection, tender, edema
Penile pain	Seldom present	Usually present
Past history	Penile trauma	Blood abnormality, hematologic malignancy
Cavernous blood gases	Arterial blood pattern	Acidosis, $PCO_2 > 60$ mmHg, $PO_2 < 30$ mmHg, $pH < 7.25$
Color doppler US	High arterial-type blood flow, elevated flow velocities, turbulent flow, focal blush of pulsatile, aneurysm/arterial-sinusoidal fistula, patency of the deep dorsal and cavernous veins.	Decrease arterial flow, venous out flow obstruction
Cavernography	Shunt	Pooling of contrast materials

術後症状は改善傾向で排尿等の日常生活は問題なく、2年ほど経過している。

考 察

持続勃起症は、性活動と無関係に4～6時間以上続く勃起状態をいう¹⁻³⁾。血行動態により、①HFPと、②LFPの2種に分類される¹⁻¹⁸⁾。HFPはほとんどが外傷により発症し¹⁻¹⁸⁾、LFPのほとんどが背景疾患として鎌状赤血球症、白血病、凝固異常などに続発する^{1,2,4-15)}。10万人あたり0.5～0.9人と稀な疾患で、50歳代が最も多いとされる¹⁾。持続勃起症の約85%¹⁻³⁾、小児症例では約95%がLFPといわれ⁴⁾、小児のHFPは稀な疾患である^{1,2,4,5)}。外傷性は小児持続勃起症の約10%程度とされる⁴⁾。

HFPは外傷により陰茎深動脈などが損傷を受け動脈-海綿体洞瘻が生じ、陰茎への動脈血が流入過剰になった結果、流出系の受動的閉鎖・相対的な静脈閉塞の病態を呈する¹⁻²⁰⁾。一方LFPは、静脈灌流が障害されることにより虚血となる^{1,2,4-15)}。発症十数時間で平滑筋に変化が生じ、24時間を超えると内皮細胞や平滑筋の壊死、陰茎海綿体の線維化が生じ、勃起障害が発生する^{1,2,4-15)}。緊急性が高い病態で、診断後ただちに治療が必要であるため、両者のすみやかな鑑別は重要である。

両者の鑑別の診断方法には、1)陰茎海綿体の膨張の度合・疼痛の有無などの臨床所見、2)血液疾患の有無や外傷歴、3)陰茎海綿体の血液ガス分析、4)ドップラーUS、5)陰茎海綿体造影、6)内陰部

動脈造影などがあげられる¹⁻²⁰⁾。鑑別点はTable 1に示す。

本症の画像診断の適応について、USは非侵襲的で簡便であり被ばくがなく、はじめに施行すべき検査である。AUA (American urological association) のガイドライン²⁾でも、カラードプラ-USの重要性が示されており、USのみでも病態の把握が可能な症例も多い。カラードプラUSでの診断能はsensitivity 73%, specificity 100%とされ^{1,2,9)}、将来的には他の検査を省くことが可能とも考えられる。

MR検査もUS同様被ばくがないが、適応については議論のあるところである。LFPに対しては、組織の線維化や平滑筋の壊死の評価に有用とされているが^{1,21)}、HFPでは末梢の陰茎内の血管の損傷や小さな動脈-海綿体瘻の描出は困難で有用性は限定的である^{1,21)}。

CT検査については、AUAおよびEAU (European Association of Urology) のガイドラインに記載はない^{1,2)}。しかし、外傷性HFPの診断は臨床所見とUSでなされても、治療に塞栓術が考慮された場合、治療対象となる血管評価のため実際には造影CT検査を施行することが多いと思われる。その際、特に小児症例では被ばくを考慮する必要があり、CT撮像条件に注意し、可能な限り低線量での撮像が望まれる。

HFPの治療方針には、一定のコンセンサスは得られていない。

AUAのガイドライン²⁾では、まずは経過観察とある。Donaldsonら⁴⁾は、無治療経過観察期間は6週間以内とし、その際2週間おき臨床所見およびUSでの評価を行うことを推奨している。小児症例では、会陰部を指で圧迫し症状の消失をみることで、HFPの診断および治療につながるとされ、piesis signと呼ばれている^{18,19)}。しかし、圧迫療法も無効例が多い^{1,2,4,5,7,10,12,13,16,17)}。

圧迫療法が奏功しない場合において、第一選択されるべき侵襲的治療は血管内治療である^{1,2,4)}。1977年にWearら²⁰⁾が自己凝血塊による内陰部動脈塞栓術が奏功した症例を報告し、以来同治療法が広く用いられるようになった。

塞栓術を選択した場合、塞栓物質には自己凝血塊やゼラチンスポンジのような一時塞栓物質と、金属コイルやNBCA (n-butyl-2-cyanoacrylate)のような永久塞栓物質がある^{1,2,4,5,7,8-13,17,18,20)}。両者の奏効率にさほど差がないが^{1,2,4,6,11,16)}、一時塞栓物質による塞栓術後の再発率は30~40%と言われ、追加塞栓術が必要な症例は少なくない^{1,2,4,5,9,10-12,16,17)}。しかし、合併症発症率はコイル塞栓術39%に対し一時塞栓物質は5%と報告されており^{2,6,11,16)}、一時塞栓物質を選択することが多い^{1,2,5,7,9,10-12,16,17)}。Cantademirら¹²⁾は、自己凝血塊を用いた塞栓術により治癒した外傷後HFPの小児7例を5~8年間経過観察し、勃起障害を生じた症例はなかったと報告している。EAUのガイドライン¹⁾によると塞栓術後は、臨床所見と超音波検査での経過観察により、追加塞栓の必要性を検討するのが望ましいとされる。

本症例においても、小児である点、合併症の発症リスクを考慮して自己凝血塊による塞栓術を施行し、追加塞栓が必要であったが、合併症なく経過している。

HFPは緊急性が低く、約60~70%の症例で自然軽快すとも報告されている^{1,2,6,11,12,15)}。しかし、経過観察症例の29%で勃起障害が生じていることから^{1,2,6,11,12)}、圧迫療法が奏功しない場合は、早期に比較的低侵襲でかつ合併症が少なく、効果的な動脈塞栓術を考慮すべきと思われる。

まとめ

自己凝血塊による動脈塞栓術を施行した外傷性HFPの小児例を報告した。本疾患は稀な疾患で、長期の経過観察に一定のコンセンサスは得られておらず今後の検討が望まれる。

●文献

- 1) A. Salonia, I. Eardley, F. Giuliano, et al : Guidelines on Priapism. European Association of Urology 2014.
- 2) Montague DK, Jarow J, Broderick GA, et al : Members of the erectile dysfunction guideline update panel; American Urological Association (AUA). Guideline on the management of priapism. J Urol 2003 ; 170 : 1318-1324.
- 3) Eracleous E, Kondoh M, Ariakos K, et al : Use Doppler ultrasound and 3-dimensional contrast + enhanced MR angiography in the diagnosis and follow-up of post-traumatic high-flow priapism in a child; *Pediatr Radiol* 2000 ; 30 : 265-267.
- 4) J,F. Donaldson, R,W. Rees, H.A. Steinbrecher : Priapism in children : a comprehensive review and clinical guideline. *Journal of Pediatric Urology* 2014 ; 10 : 11-25.
- 5) Towbin R, Hurh P, Baskin K, et al : Priapism in children : treatment with embolotherapy. *Pediatr Radiol* 2007 ; 37 : 483-487.
- 6) 多武保光宏, 太田雅也, 村田明弘日, 他 : 外傷後に発生した流入過剰型持続勃起症の1例. *泌尿会誌* 2003 ; 94 : 578-581.
- 7) Srock KW, Jacob AL, Kummer M, et al : High-Flow priapism in a Child : Treatment with Superselective Embolization. *AJR* 1996 ; 166 : 290-292.
- 8) Bertolotto M, Quaia E, Mucelli FP, et al : Color Doppler imaging of posttraumatic priapism before and after selective embolization. *Radiographics* 2003 ; 23 : 495-503.
- 9) Roussel G, Robert Y, Mahe P, et al : High-Flow Priapism in Children : Immediate Treatment by Selective Embolization. *Eur J Pediatr Surg* 2001 ; 11 : 350-353.
- 10) Mockford K, Weston M, Subramaniam R : Management of high-flow priapism in pediatric patients : A case report and review of the literature. *J Pediatr Urol* 2007 ; 3 : 404-412.

- 11) Ozturk MH, Gumus M, Donmez H, et al : Material in embolotherapy of high-flow priapism : result and long-term follow-up. *Diag Interv Radiol* 2009 ; 15 : 215-220.
- 12) Cantasdemir M, Gulsen F, Solak S, et al : Posttraumatic high-flow priapism in children treated with autologous blood clot embolization : long-term results and review of the literature. *Pediatr Radiol* 2011 ; 41 : 627-632.
- 13) 岩田研司, 会田靖夫, 井川靖彦, 他 : 外傷後小児持続勃起症の1例. *泌尿紀要* 1998 ; 44 : 679-682.
- 14) 三井健司, 水本裕之, 山田芳彰, 他 : 内陰部動脈塞栓術を施行した陰茎持続勃起症の2例. *泌尿紀要* 1995 ; 41 : 305-308.
- 15) Pryor J, Akkus E, Alter G, et al : Priapism. *J Sex Med* 2004 ; 1 : 116-120.
- 16) Kuefer R, Bartsch G Jr, Herkommer K, et al : Changing diagnostic and therapeutic concepts in high-flow priapism *Int J Impot Res* 2005 ; 17 : 109-113.
- 17) Cakan M, Altug U, Aledemir M : Is the combination of superselective transcatheter autologous clot embolization and duplex sonography-guided compression therapy useful treatment option for the patients with high-flow priapism? *Int J Impot Res* 2006 ; 18 : 141-145.
- 18) 細川幸成, 岸野辰樹, 小野隆征, 他 : 外傷性持続勃起症の1例. *泌尿紀要* 2004 ; 50 : 249-251.
- 19) Hatzichristou D, Salpinggidis G, Saripoulos D, et al : Management strategy for arterial priapism : therapeutic dilemmas. *J Urol* 2002 ; 168 : 2074-2077.
- 20) Wear JB Jr., Crummy AB, Munson BO : A new approach to the treatment of priapism. *J Urol* 1977 ; 117 : 252-254.
- 21) A. P. S. Kirkham, FRCR · Rowland O. Illing, MRCS · Suks Minhas, et al : MR Imaging of Nonmalignant Penile Lesions. *RadioGraphics* 2008 ; 28 : 837-853.