

会陰部睾丸転位の2例

埼玉医科大学泌尿器科学教室（主任：岡田耕市教授）

内島 豊・吉田 健・保母 光俊

平賀 聖悟・岡田 耕市

PERINEAL TESTIS: REPORT OF TWO CASES

Yutaka UCHIJIMA, Ken YOSHIDA, Mitsutoshi HOB0,

Seigo HIRAGA and Koichi OKADA

From the Department of Urology, Saitama Medical School

(Director: Prof. K. Okada)

Perineal testis is a very rare congenital anomaly. Since the first case of the disease reported by John Hunter in 1786, more than 113 cases have been reported in the English literature, and 13 cases have been reported in the Japanese literature. The 14th and 15th cases are presented herein.

Case 1 was a 38-year-old man who came to our clinic with the chief complaint of discomfort of the perineum. Physical examination revealed emptiness of the left scrotal contents and there was a small hen's-egg growth mass corresponding to the normal testis at the left side of the perineum. Excretory urogram showed no abnormality. Orchiopexy to the left scrotum was performed. On surgical exploration the gubernaculum testis was found obviously fixed to the perineum. Histologic examination of the biopsied ectopic testis revealed mild hypospermatogenesis.

Case 2 was a 2-year-old boy who was referred to our clinic with the chief complaint of emptiness of the right scrotal contents. Physical examination revealed a bean-sized mass corresponding to the normal testis at the right side of the perineum.

Orchiopexy to the right scrotum was performed. On surgical exploration the gubernaculum testis was found to be fixed to the perineum.

Key words: Perineal testis, Ectopic testis

緒 言

睾丸の先天的な位置の異常としては(1)停留睾丸、(2)睾丸転位(異常下降)、(3)睾丸変位の3つが挙げられるが¹⁾、後2者は前者に比較するとまれなものである。最近われわれは睾丸転位の2症例を経験したので、報告するとともに若干の文献的考察をおこなう。

症 例

症例 1

患者：38歳、運転手

主訴：残尿感・会陰部の不快感

初診：1973年6月1日

既往歴：肺結核（22年前）

家族歴：14歳、11歳の2子あり

現病歴：1973年5月頃より残尿感があり当科を受診した。その際左陰嚢内容の欠如と会陰部左側に小鶏卵大の弾力性ある腫瘤を触知し、精査を目的として同年11月15日当科へ入院した。

入院時現症：身長 168 cm、体重 59 kg。栄養状態は良好。頭頸部および胸腹部理学的所見に異常を認めなかった。陰茎および右陰嚢内容は正常であったが、左陰嚢内容は欠如し会陰部左側に小鶏卵大の睾丸らしき腫瘤を触知した (Fig. 1)。この腫瘤は用手にて陰嚢上部までの移動は可能であったが、陰嚢内へ入れることは不可能であった。二次性徴は男性型で性欲、勃起力、

性生活にも異常はなかった。

検査成績

尿所見：pH 6.0, 蛋白(-), 糖(-); 沈渣に異常所見なし。血算：白血球数 5,200/mm³, 赤血球数 365×10⁴/mm³, 血色素量 13.1 g/dl, Ht 41%。血液化学：異常所見なし。空腹時血糖：96 mg/dl。

レ線検査所見：胸部単純撮影, 排泄性腎盂造影および尿道レ線造影でとくに異常なし。以上の所見より左会陰部辜丸転位と診断して1973年11月20日に手術を施行した。

手術所見：全身麻酔下にて左陰囊下方を皮膚切開した。会陰部皮下に触知した腫瘤は左辜丸であることが確認されその発育は良好で (Fig. 2), 副辜丸にも異常を認めなかった。精管および精索血管を外鼠径輪付近まで剝離し, 両者が左外鼠径輪から出ていることも確認した。他には辜丸らしい組織は存在しなかった。辜丸導帯は左会陰部皮下に附着していた。精索の長さは十分あったのでそれ以上の剝離はおこなわず, 辜丸生検後 De Netto の方法で辜丸固定術を施行した。

組織学的所見：辜丸生検組織像であるが, 軽度の精子形成能の低下を認めた (Fig. 3)。

術後経過は良好であった。

症例 2

患者：2歳

主訴：右陰囊内容の欠如

初診：1983年1月14日

既往歴：家族歴：特記事項なし

現病歴：生下時右停留辜丸を指摘され, 経過を観察していたが, 下降しないため当科を受診した。同年7月23日精査を目的として入院した。

入院時現症：身長 93.5 cm, 体重 13 kg. 年齢相応の発育で, 頭頸部および胸腹部理学的所見に異常は認めなかった。左陰囊内容は正常であったが, 右陰囊の発育は悪く右陰囊内容は空虚であった。会陰部右側に弾力性ある小指頭大の腫瘤を触知した (Fig. 4)。

検査所見：尿所見：pH 7.5, 蛋白(-), 糖(-); 沈渣に異常所見なし。血算：白血球数 6,200/mm³, 赤血球数 413×10⁴/mm³, 血色素量 11.3 g/dl, Ht 34.2%。

血液化学：異常所見なし。内分泌学的検査：FSH 1.8 mIU/ml 以下, LH 5.1 mIU/ml, テストステロン 20 ng/dl。

レ線検査所見：胸部単純撮影その他に異常なし。

以上の所見より右会陰部辜丸転位と診断して1983年7月26日手術を施行した。

手術所見：全身麻酔下で右外鼠径輪付近の皮膚を切開した。外鼠径輪付近で精索および精管を露出し, それらを下方に追跡すると, 術前会陰部皮下に触知し

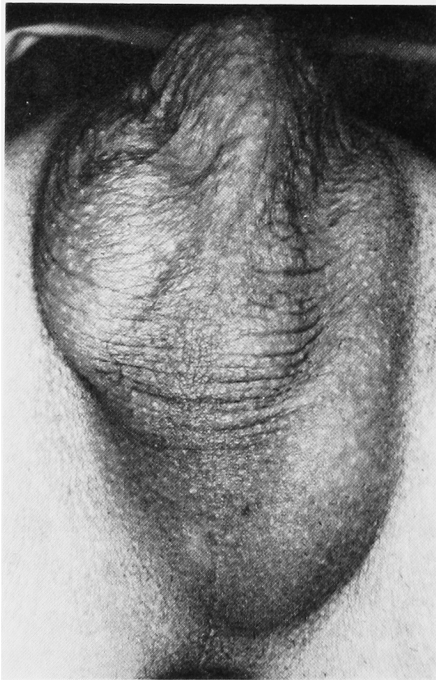


Fig. 1. Preoperative view of the left perineal testis.



Fig. 2. Surgical exploration revealed the left gubernaculum testis fixed in the perineum

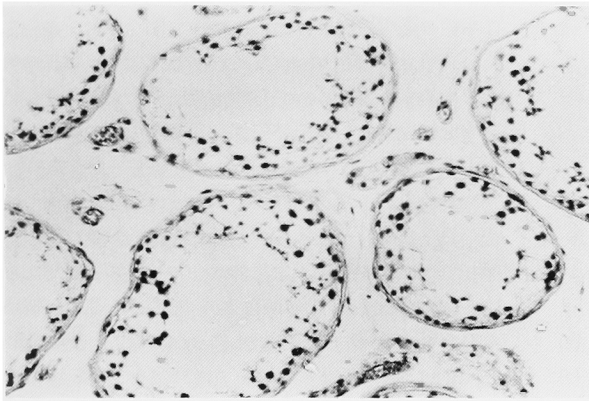


Fig. 3. Biopsy of the testis shows mild hypospermatogenesis. ($\times 100$)

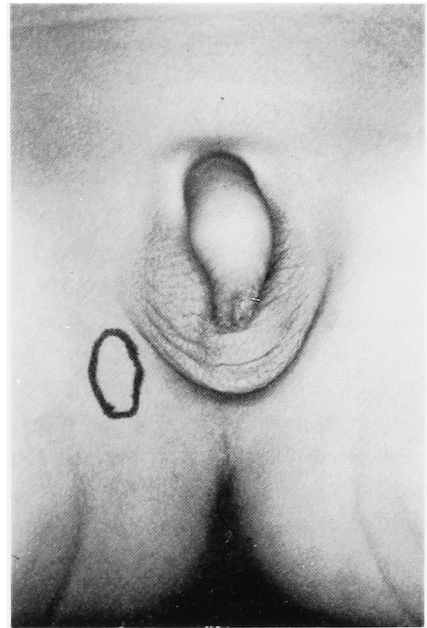


Fig. 4. Preoperative view of the right perineal testis. Circle shows the site of the testis.

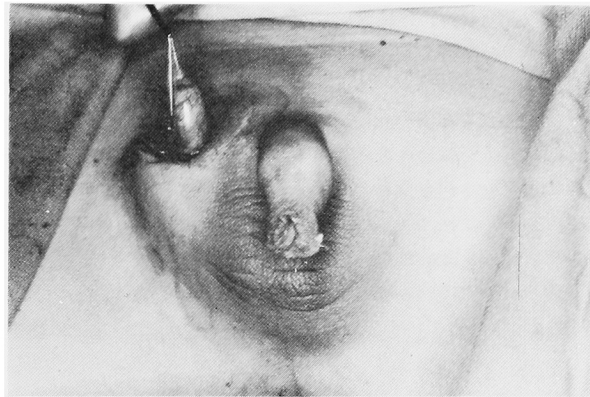


Fig. 5. Surgical exploration revealed the right gubernaculum testis fixed in the perineum

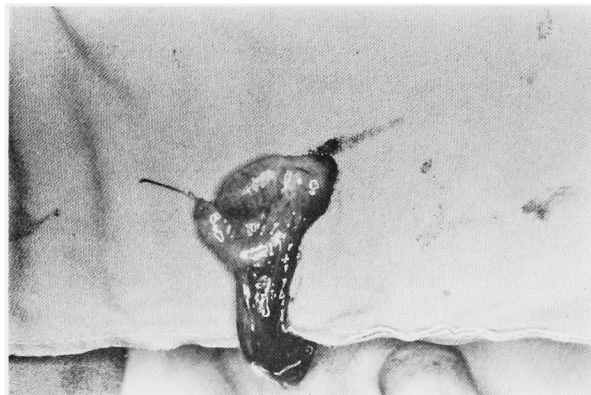


Fig. 6. This figure shows the relationship between the testis and its epididymis

た腫瘍と連絡しており、この腫瘍は容積 0.8 ml の右辜丸であることを確認した。他に辜丸らしい組織を認めず、辜丸導帯は右会陰部皮下に附着しており (Fig. 5)、副辜丸は辜丸とは体部で離れていた (Fig. 6)、精索の長さは十分であったので、De Netto の方法で辜丸固定術を施行した。なお辜丸生検は施行しなかった。

術後経過は良好であった。

考 察

辜丸転位 (Ectopia testis) とは辜丸が正常の下降路以外に位置した場合をいい、その位置する部位により、(1)間質性 (Interstitial): 外腹斜筋腱膜上方、(2)大腿部 (Femoral or crural): Scarpa 氏三角部、(3)陰茎部 (Penile): 恥骨上部、(4)会陰部 (Perineal)、(5)交叉性 (Transverse or crossed): 両側の辜丸が同一の鼠径管を通過する、の5つに分類され²⁾、(5)の交叉性辜丸転位に対して前4者は非交叉性辜丸転位とも称される。しかしながらこの分類に該当しない臍付近などの部位への辜丸転位も報告³⁾されている。またヒトの場合と異なりクジラやゾウ、サイおよび他の厚皮動物の辜丸は腹部に、ラクダやカワウソウでは鼠径管に、カンガルーでは陰茎部に、ブタ、イノシシやジャコウネコでは会陰部に存在するのが正常である⁴⁾。

1786年 John Hunter が会陰部 辜丸転位を最初に報告⁵⁾して以来、欧米では113例以上が報告⁶⁾され、本邦でも1907年阿部の報告⁷⁾以来自験2例を含めて15例が報告されている⁸⁻¹⁹⁾。Campbell は18,000例の男子剖検例中1例も会陰部 辜丸転位症例を認めなかったと報告し²⁾、Burdick らの報告でも²⁾ 停留辜丸537例中会陰部 辜丸転位は存在しない。いっぽう、Jones

ら⁴⁾は停留辜丸737例中15例 (2.0%) に会陰部 辜丸転位を報告し、Eccles²⁾ は停留辜丸936例中5例 (0.7%)、Coley⁴⁾ は鼠径ヘルニア126例中9例 (7.1%) に本症の発生を認めており、自験2例は手術を施行した停留辜丸187例中の1.1%に該当している。以上の報告を平均すると、Hunter ら²⁰⁾も指摘したごとく、会陰部 辜丸転位はおおよそ停留辜丸50例中1例の頻度で発生すると考えてよいと思われる。

辜丸転位の5型の頻度については、本邦と欧米では若干異なる傾向が認められる。われわれが調べたかぎりでは辜丸転位症の本邦例は、1983年8月までに自験2例を含めて94例が報告されている。部位不明の2例を除く92例中交叉性61例 (66.3%)、会陰部15例 (16.3%)、間質性13例 (14.1%)、陰茎部2例 (2.2%)、大腿部1例 (1.1%)の順であるのに対し、欧米では間質性ももっとも多く、ついで大腿部、会陰部、交叉性、陰茎部の順である⁶⁾。このように発生部位が本邦例と欧米例とで異なる理由は不明である。

辜丸転位の発生病理について、Hunter²¹⁾ は辜丸導帯の存在に着目し、Lockwood²¹⁾ も辜丸導帯の附着異常をその理由に挙げている。いっぽう、Sonneland は陰囊茎部の閉鎖がもっとも有力な原因だと報告²²⁾し、McGregor は会陰部領域には筋膜によって陰囊部、会陰部および大腿部の3つの嚢が形成されるが、陰囊部嚢の發育不全により辜丸転位が発生する可能性を指摘している²³⁾。しかし、真の原因については現在まだあきらかにされていない。

本邦会陰部 辜丸転位15例 (Table 1) について検討すると、年齢は生後2カ月から38歳までで平均年齢は9.8歳であった。主訴は陰囊内容の欠如9例、会陰部

Table 1. Ectopic testis in the Japanese literature

No.	報告者	(報告年)	年齢	患側	辜丸の大きさ	機能	合併症
1	阿部	(1907)	10	右			同側陰囊の發育不良・対側停留辜丸
2	松村	(1910)	21	右	胡桃大		同側陰囊の發育不良
3	鈴木	(1939)	2*	右	小児拇指頭大		嵌頓ヘルニア
4	田村	(1954)	26	右	拇指頭大		
5	高安・ほか	(1958)	10	右		年齢相応の精子形成能	
6	疋田	(1965)	6	左		年齢相応の精子形成能	同側陰囊の發育不良・対側停留辜丸
7	河村・ほか	(1970)	8*	左		年齢相応の精子形成能	
8	岡田・ほか	(1971)	2	両			同側陰囊の發育不良
9	若月・ほか	(1978)	4	左	小指頭大		
10	漆久保・ほか	(1978)	1	左	未熟辜丸組織		同側陰囊の發育不良
11	川口・ほか	(1978)	13	右			同側陰囊水腫
12	小谷・ほか	(1979)	3	左			
13	佐藤・ほか	(1981)	11	左		年齢相応の精子形成能	
14	自験例	(1983)	38	左		軽度の精子形成能の低下	
15	自験例	(1983)	2	右	辜丸容積 0.8ml		副辜丸付着異常

*月

痛および不快感4例，会陰部の腫脹1例，不明1例であった。合併症としては患側陰囊の發育不全が全体の47%を占め，対側停留睾丸2例，同側睾丸水腫1例も認めた。IVPは2例にしか施行されていないが，2例とも上部尿路は正常であった。

本症において交叉性以外の転位した睾丸の精子形成能について検討した報告は少ないが，正常あるいはほぼ正常の精子形成能を示すと考えられている^{7,20)}。しかし Mack は20例の間質性睾丸転位を組織学的に検討し，大部分の症例で精子形成細胞の欠損を認め，それが思春期前にすでに存在している事実を指摘し²⁴⁾，Wattenberg²⁵⁾も精子形成能の低下を示す症例を報告している。De la Balze²⁶⁾は転位した睾丸に組織学的変化として，精子形成細胞の成熟の遅延と病的な成熟を認めたと報告している。実際，自験症例1においても精子形成能の低下が認められており，交叉性睾丸転位症例²⁷⁾(32例中18例に精子形成能の低下を認めた)ほど高頻度ではないが，会陰部睾丸転位症例の場合も精子形成能の低下を示すことがかなり多いことが示唆された。交叉性睾丸転位においてはかなりの頻度で睾丸の悪性腫瘍の発生が認められている。小寺²⁷⁾らは本邦交叉性睾丸転位61例中7例(11.5%)に睾丸腫瘍の発生を認め，その組織像は Seminoma 6例，混合腫瘍1例であったと報告した。Williams ら²⁸⁾は間質性睾丸転位2例に睾丸腫瘍の発生を認め，睾丸転位においては一般に腫瘍発生の危険性の高いことを指摘している。しかしながら会陰部睾丸転位例については現在までのところ睾丸腫瘍の発生は報告されていない。

治療としては停留睾丸と同じように睾丸固定術がおもに施行されている。睾丸転位の場合，転位した睾丸は思春期を経過すると萎縮をはじめ，精子形成能の低下を示す症例がみられること，外傷を受けやすく，悪性変化をする頻度も高く，鼠径ヘルニアを合併することが多いことなどから，早期に手術をおこなった方が良いと考えられ，自験例についても睾丸固定術を施行した。

結 語

会陰部睾丸転位の2例を経験したので報告し，本邦15症例について文献的考察を加えた。

稿を終るにあたり故駒瀬元治教授に感謝いたします。

文 献

1) 宍戸仙太郎：泌尿器科学入門，4版，65～67，南山堂，東京，1970

- 2) Campbell MF: Perineal testicle. JAMA **106**: 2232～2234, 1976
- 3) Furtado AJL, Calado D and Martins J: Retro-umbilical ectopic testicle report of a case. J Urol **117**: 805～806, 1977
- 4) Jones AE and Lieberthal F: Perineal testicle. J Urol **40**: 658～665, 1938
- 5) Rea CE: The perineal testis. Ann Surg **108**: 1083～1087, 1938
- 6) Middleton GW, Beamon CR and Gillenwater JY: Two rare cases of ectopic testis. J Urol **115**: 455～458, 1976
- 7) 阿部資夫：会陰睾丸の一例。日外会誌 **9**: 157, 1907
- 8) 松村虎之介：会陰睾丸＝整復術ヲ施行シテ効果ヲ得タル一例。軍医団雑誌 **15**: 585～590, 1919
- 9) 鈴木忠一郎：会陰睾丸に変位性嵌頓ヘルニアを合併した一例に就て。外科 **3**: 1134～1148, 1939
- 10) 田村道夫：稀有なる変位睾丸(Ectopia testis scrotofemoralis)の一例。神戸医科大学紀要 **5**: 1412～1413, 1954
- 11) 高安久雄・佐藤昭太郎・梁取春夫・睾丸会陰部転位。手術 **13**: 203～207, 1978
- 12) 疋田政博：先天性両側睾丸転位症(右腹部，左会陰部転位)。札幌医誌 **27**: 307～312, 1965
- 13) 河村信夫・東福寺英之・川上 隆：非交叉性睾丸転位の2例。臨泌 **24**: 255～259, 1970
- 14) 岡田隆夫・若林武夫：両側会陰性睾丸転位の一例。埼玉医会誌 **6**: 130～132, 1971
- 15) 若月 晶・坂口 洋・奥田 暲：会陰部睾丸転位の一例。西日泌尿 **40**: 541～545, 1978
- 16) 漆久保潔・内山継躬・三田 修・伊藤伊一郎・新津勝宏：小児の会陰部睾丸転位の一例。日小外会誌 **14**: 897～902, 1978
- 17) 川口正一・村山和夫・久住治男・近沢秀幸：会陰部転移睾丸の一例。西日泌尿 **40**: 905～908, 1978
- 18) 小谷俊一・島居 肇：Ectopic testis. 日泌尿会誌 **70**: 246, 1979
- 19) 佐藤和彦・岩本晃明・広川 信・松下和彦・朝倉茂夫：会陰部睾丸転位の一例。泌尿紀要 **27**: 693～697, 1981
- 20) Hunt RW: Ectopic testis: A case of bilateral ectopia testis pelvis and its surgical correction. J Urol **44**: 325～332, 1940
- 21) Coplan MM, Woods FM and Melvin PD:

- The perineal testis. *South Med J* **50** : 1388~1346, 1957
- 22) Sonneland SG: Congenital perineal testicle. *Ann Surg* **80** : 716~719, 1924
- 23) McGregor AL : The third inguinal ring. *Surg Gynec Obst* **49** : 293~307, 1929
- 24) Mack WS, Scott LS, Ferguson-Smith MA and Lennox B : Ectopic testis and true undescended testis ; A histological comparison. *J Path Bact* **82** : 439~443, 1961
- 25) Wattenberg CA, Rape MG and Bear JB : Perineal testicle. *J Urol* **62** : 858~861, 1949
- 26) De la Balze FA, Vilar O, Arrillage F, Gurtman AI and Mancini RE: Histological study of ectopic testis during puberty. *J Clin Endo Metab* **15** : 875~876, 1949
- 27) 小寺重行・大石幸彦・木戸 晃・岡崎武二郎・柳沢宗利・吉田正林・大西哲郎・町田豊平: 左交叉性睾丸転位に右睾丸腫瘍および子宮を伴った1例. *泌尿紀要* **27** : 529~535, 1981
- 28) Williams, TR and Brendler H : Carcinoma in situ of the ectopic testis. *J Urol* **117** : 610~612, 1977

(1984年1月26日受付)