

不妊を主訴とした精管異所開口の1例

三品泌尿器科医院

三 品 輝 男

A CASE OF ECTOPIC VAS DEFERENS WITH A CHIEF COMPLAINT OF MALE STERILITY

Teruo Mishina

From the Mishina Urological Office, Kyoto, Japan

A case of ectopic vas deferens in a 40-year-old male was reported.

He visited our clinic with a complaint of male sterility for the past 10 years.

Urological examinations revealed azoospermia, right renal aplasia and the ectopic insertion of right vas deferens into the right lower ureter with a blind-ending ureterocele.

Bilateral testicular histological studies showed normal spermatogenesis in right testis and no spermatogenesis in left one.

A vasovasostomy was performed. Sperm were seen in the semen 3 weeks after the operation. Including this patient, 54 cases (74 ectopic vas deferens) have been reported in the literature to date.

The characteristics of age, subjective complaints, accompanied anomalies, diagnosis, treatment and the embryology are discussed.

(Acta Urol. Jpn. 39: 863-868, 1993)

Key words: Ectopic vas deferens, Male sterility

緒 言

精管異所開口はきわめて稀な奇形の1つである。今回、筆者は不妊を主訴とした本症を経験したので、臨床経過を報告するとともに、併せて文献的考察を行う。

症 例

患者：40歳、男性

主訴：不妊

初診：1990年12月27日

現病歴：1980年10月19日結婚したが子供にめぐまらず、精査を求め当診療所に受診した。

既往歴：15歳に急性耳下腺炎に罹患時に、左精巣炎を併発した。

家族歴：特記すべきことはなし

現症：胸部、腹部ともに理学的所見に異常を認めない。左精巣に軽度萎縮を認めるも、右精巣は正常大であり、陰茎、恥毛、外陰部および前立腺に異常を認めない。

検査所見：検尿、血液一般および血液生化学的検査

に異常を認めない。精液検査：正常量だが鏡検にて無精子症であった。X線およびMRI所見：右精囊造影にて、右精管は拡張する右尿管に開口していた。右精囊は造影されなかった。右尿管は上方は右仙腸骨関節部の高さで盲端に終っており、下方は尿管瘤様に拡張し、膀胱部に盲端に終っていた。左精囊造影に異常所見は認められなかった (Fig. 1)。腎尿管膀胱部単純撮影 (KUB) にて異常石灰化および腎の奇形を認めず、点滴静注性腎盂造影 (DIP) にて右腎は描出されなかった。腹部CTおよびMRIにて右腎の形成は認められなかった。MRI T₁強調画像にて、右尿管が尿管瘤様に拡張し、上・下方いずれも盲端に終っている (Fig. 2)。排尿時膀胱造影にて両側の膀胱尿管逆流現象 (VUR) は認められなかった。内視鏡所見：右膀胱三角部形成はなく、右尿管口部あたりが尿管瘤様に膨隆するも開口部は認められなかった。精阜形成はみられた。精巣病理組織所見：両側精巣生検にて、右精巣の精細管の径は保たれているが spermatozoa の形成は少なく、Johnsen's score 9であった。左精巣の精細管は基底膜の肥厚を伴い萎縮し、管内に germ cell, Sertoli's cell とともに認められない (Johnsen's

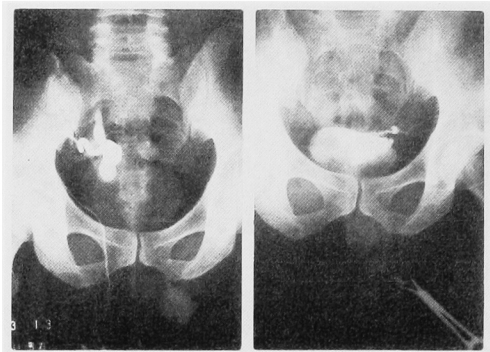


Fig. 1. Vesiculography: Ectopic opening of right vas deferens into right lower ureter.



Fig. 2. MRI in T₁ phase: Right lower ureterectasia like an ureterocele without an orifice.

score 1).

治療経過: 1992. 8. 27. 右遠位(精巣側)精管と左近位精管との精管精管吻合術を8-0エチコン糸にて行った。術後3週目の精液検査にて30×10⁶/mlの精子が認められた。現在経過観察中である。

考 察

精管異所開口は稀な奇形で, Seitzmanら(1960)が初めて報告し, 本邦では古屋(1972)が報告したのが最初である¹⁾。本邦例は1987年に島田ら¹⁾が9例を, 外国例は1980年に三浦ら²⁾が19例を集計している。こ

れらの症例を含め, 1992年末までに本邦では自験例を含め17例24精管³⁻⁹⁾, 外国においては37例50精管¹⁰⁻²⁴⁾, あわせて54例74精管の報告がみられる。

これら54例について統計的観察を行う。

年齢分布: 新生児より74歳におよぶが, 1歳未満《新生児》19例(35%)《17例(31%)》, 1~9歳16例(30%), 10歳以上16例(30%), 不明3例で, 新生児を含む若年層に多く発見されている。これは鎖肛をはじめとする重篤な奇形を合併しているためである。

患側: 右側17例(31%), 左側15例(28%), 両側20例(37%), 不明2例でやや両側が多い。

異所開口部: Table 1に示すごとく, 下部尿管, 膀胱, ミューラ管嚢腫への異所開口例が多いが, 対側精囊⁹⁾, 対側精管¹¹⁾, 直腸⁷⁾などの稀な異所開口例も報告されている。

精囊: Table 1に示すごとく, 低形成4例, 正常形成10例, 無形成43例, 不明17例である。精囊形成と精管開口部との関係は必ずしも明確ではないが, 精管の腎盂・腎杯, 膀胱および対側精管への開口例では精囊形成は認められていない。

精阜: 精阜形成は, 有18例, 無4例, 不明32例で, 形成のみられないのは, 精管異所開口部が男子小子宮2例, 両側下部尿管1例, 両側膀胱1例のいずれも両側精管異所開口例である。

腎・尿管の奇形: 腎・尿管の合併奇形は, 腎無形成6例, 腎低形成12例, 融合腎5例, 骨盤腎6例, 不完全重複腎盂尿管6例, 総腸骨動脈後尿管5例, 尿管盲端3例, 多囊腎2例, 腎回転異常, 腎杯形成不全, 大動脈後尿管および腎盂尿管移行部狭窄が各1例認められる。自験例は腎無形成と尿管盲端を合併していた。また74異所開口精管に対応する尿管のうち18尿管(24%)に尿管異所開口を伴っており, VURは25尿管

Table 1. The correlation between site of vas insertion and seminal vesicular formation.

開口部	精管数	精囊形成		
		有(低形成)	無	不明
腎盂 腎杯	3	0	3	0
上・中部尿管	7	1	5	1
下部尿管	27	2(1)	19	6
膀胱	17	0	13	4
対側精囊	1	1	0	0
対側精管	1	0	1	0
男子小子宮	4	4	0	0
ミューラ管嚢腫	13	5(2)	2	6
直腸	1	1(1)	0	0
計	74	14(4)	43	17

(34%)に認められている。

その他の合併奇形：本症における合併奇形は、腎・尿管の奇形以外に種々の奇形が認められている。特に総排泄腔よりの尿生殖洞分化異常である鎖肛を21例(39%)に、直腸-膀胱、尿道、会陰瘻を12例(22%)に認めている。その他尿道下裂9例、停留精巣8例、脊椎・肋骨奇形(仙骨形成不全)10例(6例)、心奇形5例、気管食道瘻4例、染色体異常、でん部位置異常および腸異常各2例、陰茎彎曲症、尿道狭窄、複尿道、二分陰囊、大動脈狭窄、腹直筋減少、手指異常、先天性股関節脱臼、膝関節拘縮、多趾症および全身血管腫各1例などが認められる。

症状・診断契機：新生児のほとんどは重篤な他臓器合併奇形(12例)の診断・治療中あるいは剖検時(6例)に発見されている。重篤な合併奇形を伴わない症例では、尿路感染症(UTI)(9例)や精巣上体炎(8例)がおもな症状で、その他排尿障害7例、外陰部奇形7例、腹部症状5例、自験例のように不妊を主訴とするもの4例、血尿4例、発熱2例、腎機能低下2例などである。

診断：本症の診断は、膀胱尿道造影21例(39%)、手術中12例(22%)、精嚢造影11例(20%)、剖検6例(11%)、逆行性腎盂造影3例(6%)、嚢胞造影1例(2%)である。精嚢造影を行えば診断は確定するが、IVPやCUGでの所見を見逃さないことと、若年

者での精巣上体炎に対しては、本症も念頭に入れておく必要がある。

治療：本症においては、合併する尿路および消化器系の治療が優先的に行われ、精管異所開口そのものに対しては精巣上体炎の予防目的で精管摘除や精管結紮術19例、その他精巣摘除術5例、精管膀胱新吻合術4例、ミューラ管嚢腫摘除術4例、精巣上体摘除術、精管精嚢吻合術および男子小子宮摘除術各2例、精管精嚢摘除術1例などが行われている。将来の妊孕性に対しては、精嚢や射精管が欠損しているため、両側例においては特に現在積極的な試みはなされていない。自験例のように片側例で、健康側精巣に精子形成がみられないため、精管精嚢吻合により精液中に精子が認められたことは意義深いと考えられる。

発生機序：精管異所開口をどのように発生学的に説明すべきであろうか。本症とは異なる尿管異所開口発生機序から考える必要がある。発生学的に胎生4週頃、中腎管の尾部に尿管芽が発生してくるが、この部分を総中腎管(common mesonephric duct: CMD)と呼び将来尿生殖洞に吸収され膀胱三角部および後部尿道の一部を形成するので、trigonal precursorと呼ばれている。Mackie and Stephens²⁵⁾はこのCMDを3つのzoneすなわちcranio zone: Cr (D, C, B), normal zone: O (A, E, F), caudo zone: Ca (G, H)に分け、尿管芽の発生する位置により尿管の

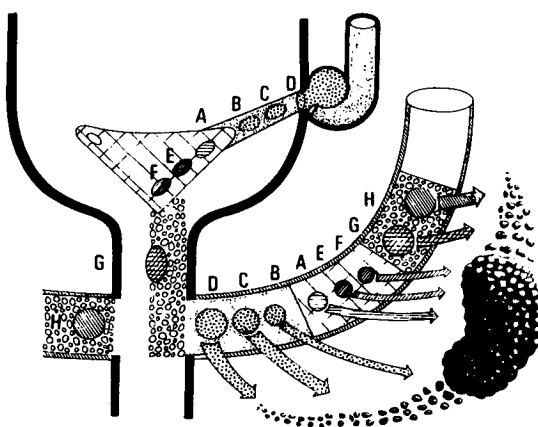


Fig. 3. Relationship of orifice zones in bladder and urethra and points of origin from wolffian duct is shown, as well as relationship of bud positions on wolffian duct and nephrogenic blastema. A, E and F: orthotopic ureteral budding zone. B, C and D: cranio-ureteral budding zone. G and H: caudo-ureteral budding zone with G in urethra and H in sex duct.

(From Mackie GG and Stephens FD²⁵⁾)

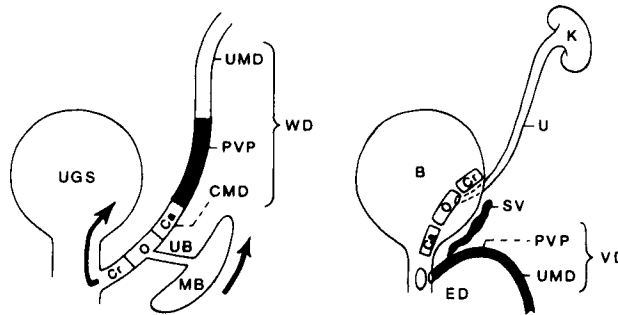


Fig. 4. The development of urogenital organs. UGS: urogenital sinus, WD: Wolffian duct, UMD: upper mesonephric duct, PVP: proximal vas precursor, CMD: common mesonephric duct, Ca: caudo-ureteral budding zone, O: orthotopic ureteral budding zone, Cr: cranio-ureteral budding zone, UB: ureteral bud, MB: meta-nephric blasatema, K: kidney, U: ureter, B: bladder, VD: vas deferens, SV: seminal vesicle, ED: ejaculatory duct, (From Gibbons MD et al.²⁶⁾)

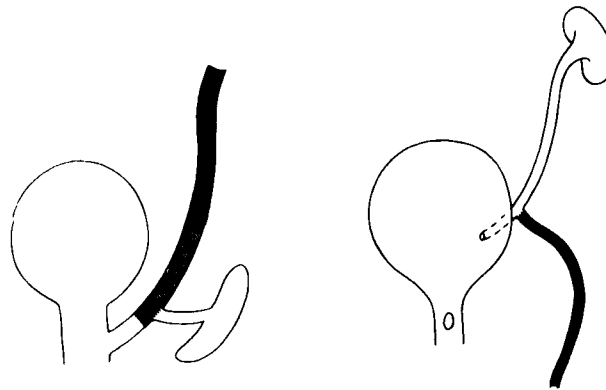


Fig. 5. The mechanism of an ectopic insertion of the vas into the ureter. (From Gibbons MD et al.²⁶⁾)

異所開口を説明している。すなわち尿管芽が cranio zone より発生すると CMD が短く生殖洞への吸収が早いため、尿管口の位置は外側方に偏位し (B, C, D), 膀胱の筋層を貫く距離が短くなり, VUR が発生しやすくなる。一方尿管芽が caudo zone より発生すると, CMD が長く生殖洞への吸収が不十分のため, 後部尿道 (G) や精管・精囊 (H) に開口する (Fig. 3)。Mackie and Stephens²⁵⁾ はこの仮説に基づき, Weigert Meyer の法則を理論的に説明している。

Gibbons ら²⁶⁾はこの Mackie and Stephens²⁵⁾ の仮説に加え, 中腎管の一部に将来の射精管・精囊およ

び傍尿道精管に分化する proximal vas precursor: PVP なる分節を仮定した。すなわち中腎管の最も尾側を尿管芽が発生し, 将来の膀胱三角部を形成する CMD, 最も頭側を将来の精管と精囊上部が形成される上中腎管 upper mesonephric duct: UMD, これらに挟まれた PVP の3分節に分けた (Fig. 4)。そして, PVP が尿管芽発生部の直上まで尾側に下降した場合に尿管と精管はそれぞれ別々に膀胱内に開口し, さらに下降して尿管芽発生部を含む位置にずれた場合に精管は尿管の種々の高さに異所開口することとなる (Fig. 5)。このような場合には, PVP の下降に伴い CMD が短くなるので膀胱三角部形成は悪く VUR

を高頻度で合併するわけである。さらに PVP のずれに尿管芽発生部位が頭側あるいは尾側に偏ると、種々の組合せの精管異所開口と尿管異所開口が合併する。また PVP は発生学的に尿管にも精管にも分化しうる性質 bipotential nature をもっており、UMD に近づくと vasation, 尿管芽に近い CMD に近づくと ureteralization の現象が認められる¹⁾

ミューラ管囊腫や男性子宮への精管異所開口は、女性における尿管の腔への異所開口と同様に、胎生期におけるウォルフ管の吸収異常と考えられている⁸⁾。

結 語

不妊を主訴とした40歳男性における右尿管下部に開口する精管異所開口例を報告した。右腎無形成、右尿管頭側盲端、右尿管瘤様拡張盲端尿管、右膀胱三角部無形成を合併していた。精子形成は右精巣に認められるも、左精巣には認められず、精管精管吻合術を行った。術後精液中に精子を認めた。

精管異所開口は比較的稀な疾患であり、自験例を含め本邦ならびに外国文献では現在までに54例が報告されている。これらにつき、診断時年齢、症状、合併奇形、診断、治療および発生機序につき若干の文献的考察を行った。

本論文の要旨は第142回日本泌尿器科学会関西地方会(1993.2.6.於大阪)において報告した。

文 献

- 1) 島田憲次, 竹村俊哉, 田口憲造, ほか: 両側精管の尿管への開口異常症例. 日小児外会誌 **23**: 558-564, 1987
- 2) 三浦 猛, 里見佳昭: 精管開口異常. 泌尿紀要 **26**: 345-351, 1980
- 3) 大城 清, 小松洋輔, 西尾恭規: 尿管の走行異常をともなる異所性精管の1例. 日泌尿会誌 **73**: 389, 1982
- 4) 後藤敏明, 荒川政憲, 小柳知彦, ほか: 精管開口異常の1例. 臨泌 **41**: 351-354, 1987
- 5) 辻 裕明, 喜連秀夫, 竹沢 豊: 右腎無形成精管口異常膀胱尿管精路結石の1例. 日泌尿会誌 **79**: 2052, 1988
- 6) 小林 剛, 当麻嗣裕, 石渡大介: 左精管異所開口の1例. 日泌尿会誌 **79**: 2071, 1988
- 7) 田淵絵美, 松本新一, 大坪正明, ほか: 精管開口異常の1例. 日医放線会誌 **49**: 390, 1989
- 8) Takahashi M, Kaneko S, Ogawa I, et al.: A case of ectopic opening of vasa deferentia into Müllerian duct cyst. J Paediatr Surg **27**: 761-763, 1992
- 9) Watanabe M, Hirano J, Numasawa K, et al.: Crossed ectopia of left vas deferens, leaving ipsilateral seminal vesicle in normal position. J Urol **148**: 886-888, 1992
- 10) Stanley KE: Müllerian duct cyst variant: Utriculocele and inclusion of ejaculatory ducts. Report of a case. J Urol **102**: 233-235, 1969
- 11) Beall ME and Ware RE: Intercommunicating vas deferens. J Urol **116**: 126-127, 1976
- 12) Mahboubi S and Spackman TJ: Ectopic vas deferens: A report of two cases and review of the literature. AJR **130**: 1093-1095, 1978
- 13) Morgan RJ, Williams DI and Pryor JP: Müllerian duct remnants in the male. Br J Urol **51**: 488-492, 1979
- 14) Smith JA and Meddleton RG: Surgical approach to large Müllerian duct cysts. Urology **14**: 44-46, 1979
- 15) Radhkrishnan J, Vermillion CD and Hendren WH: Vasa deferentia inserting into retroiliac ureters. J Urol **124**: 746-747, 1980
- 16) Ayyat F, Palmer MD and Tingley JO: Ectopic vas deferens communicating with lower ureter. Urology **19**: 423-426, 1982
- 17) Noseworthy J and Persky L: Spectrum of bilateral ureteral ectopia. Urology **19**: 489-494, 1982
- 18) Vondermark II JS: The persisting mesonephric duct syndrome. J Urol **130**: 958-961, 1983
- 19) Seymandi PL, Merlini E and Durante GF: Un caso si sbocco ectopico del dotto deferente in vesica. Med Surg Ped **4**: 691-694, 1982
- 20) Redman JF, Jacks DC and Golladay ES: Vasal vesical communication. Urology **22**: 59-60, 1983
- 21) Tank ES and Hatch DA: Müllerian remnant causing bladder outlet obstruction. J Paediatr Surg **21**: 77-80, 1986
- 22) Cabral B, Majidi A and Gonzalez R: Ectopic vas deferentia in an infant with the prune belly syndrome. J d'Urol **94**: 223-226, 1988
- 23) Hicks CM, Skoog SJ and Done S: Ectopic vas deferens, imperforate anus and hypospadias: A new triad. J Urol **141**: 586-588, 1989
- 24) Fasanelli S, Graziani M, Campobasso P, et al.: Congenital ectopic vas deferens with hypospadias. Pediatr Radiol **22**: 221-222, 1992
- 25) Mackie GG and Stephens FD: Duplex kidneys: A correlation of renal dysplasia with position of the ureteral orifice. J Urol **114**: 274-280, 1975

- 26) Gibbons MD, Cromie WJ and Duckett JR
JW: Ectopic was deferens. J Urol 120: 597
-604, 1978

(Received on April 15, 1993)
(Accepted on May 27, 1993)
(迅速掲載)