

単睾丸症の20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・中目 康彦
富田 雅乃・保母 光俊
竹内 信一・平賀 聖悟
岡田 耕市

A REPORT OF TWENTY CASES OF MONORCHISM

Yutaka UCHIJIMA, Yasuhiko NAKAME, Masano TOMITA,
Mitsutoshi HOB0, Shin-ici TAKEUCHI,
Seigo HIRAGA and Koichi OKADA

*From the Department of Urology, Saitama Medical School, Moroyama, Iruma-gun, Saitama
(Director: Prof. K. Okada)*

Twenty cases of monorchism were found in 177 cryptorchid patients surgically treated in our clinic between 1972 and 1982. The lesion was in the right side in 6 cases and the left side in 14 cases. According to Igawa's classification, defect of testis alone (type I) was found in 5 of 20 cases, complicated defect of epididymis (type II) in 9 cases, and defect of both vas deferens and epididymis (type III) in 6 cases. All vasa terminated into a small nodular tissue.

Intravenous pyelography was carried out in 10 cases of monorchism but no abnormality was found. Genitourinary anomalies accompanied 6 cases, i.e., contralateral inguinal hernia in 2 cases, contralateral hydrocele in 2 cases, contralateral cryptorchidism in one case, and bilateral inguinal hernia in one case.

Key word: Monorchism

緒 言

先天性単睾丸症は1868年 Gruber¹⁾が自験1例を加えた23例を最初に報告して以来、比較的まれな疾患と考えられてきたが、近年、報告例が増加し、従来考えられてきた以上に本症が存在する可能性が示唆されている²⁾。われわれも当教室において本症の20例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

対象および検索成績

1972年1月～1982年8月までの10年8カ月間に埼玉医科大学泌尿器科教室で停留辜丸として手術をおこなった本症と診断した20例を対象として統計的観察をおこなった。

1)発生頻度：当科外来における10年8カ月間の男子新患者総数9,027例中停留辜丸症例は387例(4.3%)であり、そのうち手術を施行した停留辜丸177症例中20例(11.3%)に本症を認めた。

2)年齢：初診時年齢は生後5月から28歳までで4歳がもっとも多く、停留辜丸症例と同じ傾向を示した(Table 1)。

3)患側：左側14例、右側6例で左右の比率は2.3対1と患側は左側が多かった。

4)精路異常：井川ら³⁾の分類に従い、I型(辜丸のみの欠損)が5例、II型(辜丸とともに副辜丸も欠損)が9例、III型(辜丸、副辜丸とともに精管も欠損)が6例であった。

5)尿路異常：IVPを施行した10例中全例異常を認

Table 1. Surgical findings in 20 patients of monorchism

No.	Name	Age(year)	Side	anatomic relation			Igawa's classification
				vas	epididymis	spermatic vessels	
1	N.T.	3	left	-	-	-	III
2	T.M.	1	right	+	-	+	II
3	I.H.	7	right	+	-	+	II
4	M.H.	5	left	-	-	-	III
5	S.S.	4	left	-	-	-	III
6	T.N.	4	right	+	-	-	II
7	M.K.	28	left	-	-	-	III
8	R.Y.	1>	left	+	-	+	II
9	Y.I.	1>	left	-	-	-	III
10	S.N.	13	left	+	+	+	I
11	T.K.	4	right	+	-	+	II
12*	H.K.	6	left	+	-	+	II
13*	T.K.	4	left	+	-	+	II
14	Y.K.	11	right	+	-	+	II
15	A.T.	6	left	-	-	-	III
16	H.K.	4	right	+	+	+	I
17	M.Y.	8	left	+	-	+	II
18	Y.T.	5	left	+	+	+	I
19	Y.N.	4	left	+	+	+	I
20	K.S.	8	left	+	+	+	I

* Brothers

めなかった。

6)合併症：対側の鼠径ヘルニア2例，対側の陰嚢水腫2例，対側の停留辜丸1例および両側鼠径ヘルニア1例をともなっていた。

つぎに2，3の代表的症例を示す。

症例1 (Table 1. No. 10) 13歳

主訴：左陰嚢内容の欠如

既往歴・家族歴：特記事項なし

現病歴：生後80日目の健康診断時，左停留辜丸と診断されたが放置していた。しかし，辜丸の下降がみられないので1977年7月25日当科初診。同8月19日精査目的にて入院。

現症：陰毛の発育は年齢相当で，外陰部は正常男子であった。右辜丸は正常であったが，左陰嚢内容は空虚で，鼠径部にも辜丸を触知しなかった。

一般検査所見：尿検査，血液生化学的検査に異常を認めず。血中LH 5.4 mIU/ml，血中FSH 14.1 mIU/ml で正常範囲内であった。

X線検査所見：胸部X線像および排泄性腎盂造影で異常を認めず。

以上の所見より左腹部停留辜丸あるいは左辜丸欠損

を疑い，1977年8月23日手術を施行した。

手術所見：外鼠径輪付近に精管と精索血管を認め精管の先端は結合織様組織に終わっていた。内鼠径輪付近および腹腔内を検索したが辜丸を認めなかった。左精管より左精嚢腺撮影を施行すると正常の精嚢が造影された (Fig. 1)。

病理組織学的所見：結合織様組織は高度の発育不全を示す副辜丸組織で，辜丸組織は認められなかった (Fig. 2)。

症例2 (Table 1. No. 2) 1歳

主訴：右陰嚢内容の欠如

既往歴・家族歴：特記事項なし

現病歴：生下時，右陰嚢内容の欠如を指摘され，紹介にて1974年10月11日当科初診。右停留辜丸と診断され経過観察中であったが辜丸の下降が認められないので1979年4月20日精査目的にて入院。

現症：成長，発育は年齢相当であった。外陰部に異常を認めず，左辜丸は正常であったが，右陰嚢内容は空虚で，鼠径部にも辜丸を触知しなかった。

一般検査所見：尿検査，血液生化学的検査に異常を認めず。

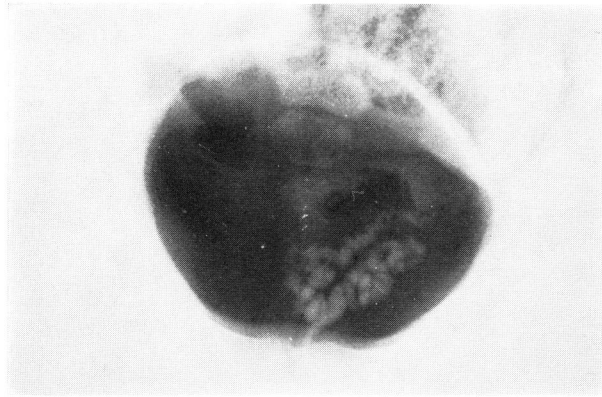


Fig. 1. Case 1. Normal left side seminal vesiculogram

以上の所見より右腹部停留辜丸あるいは右辜丸欠損を疑い、1979年4月24日手術を施行した。

手術所見：右鼠径輪内に示指頭大の小塊を認め、精管と精索血管はこの小塊で終わっていた (Fig. 3)。内鼠径輪付近および腹腔内を検索したが辜丸を認めなかった。

病理組織学的所見：精管組織は存在するも、小塊は毛細血管が豊富な線維脂肪組織で、辜丸および副辜丸組織は認めなかった (Fig. 4a, 4b)。

症例3 (Table 1. No. 15) 6歳

主訴：左陰囊内容の欠如

既往歴・家族歴：特記事項なし

現病歴：生下時左停留辜丸と診断されたが放置していた。しかし辜丸の下降がみられないので1979年7月6日当科初診。同7月23日精査目的にて入院。

現症：真性包茎以外外陰部に異常を認めず。右辜丸は正常であったが、左陰囊内容は空虚で、鼠径部にも辜丸を触知しなかった。

一般検査所見：尿検査、血液生化学的検査に異常を認めず。

X線検査所見：胸部X線像および排泄性腎盂造影で異常を認めず。

以上の所見より左腹部停留辜丸あるいは左辜丸欠損を疑い、1979年7月24日手術を施行した。

手術所見：陰囊および鼠径管内に辜丸を認めなかったため、内鼠径輪付近、腹腔内および腎周囲まで検索したが、辜丸組織は認められず、精管および精索血管も存在しなかった。

考 察

単睾丸症は本邦においては1939年小林⁴⁾が最初に報告 (27歳、副辜丸および精管は存在) し、その後吉本ら⁵⁾ (1978) は129例、石戸ら⁶⁾ (1979) は148例集計報

告している。停留辜丸に対する頻度について松下ら⁷⁾ は停留辜丸手術例の6.2%、吉本らは⁵⁾ 6.9%、布施ら⁸⁾ は11.7%、Gross ら⁹⁾ は2.7%、Levitt ら¹⁰⁾ は4%としており、自験例の検索からも本症は停留辜丸手術例の11.3%の頻度に認められ、従来考えられていたほど、まれな疾患ではないといえる。

患側については Sebileau ら¹¹⁾ は左右比2:1、Godard¹²⁾ は4:1、吉本ら⁵⁾ は2.4:1と左側に多いと報告しており、自験例でも2.3:1とこれまでの報告例¹³⁾ と同様に左側に多かった。

合併症としては精路異常がもっとも多い¹⁴⁾。本邦例では井川らのⅡ型を示すものが多いが、自験例も同様にⅡ型の頻度が高かった。Ⅰ型例でも副辜丸は必ずしも正常ではなく、自験代表症例1のように高度の發育不全を示すものが多い。その他に自験例と同じく対側停留辜丸、対側陰囊水腫を合併する症例や、膀胱外反、肛門閉鎖、尿道直腸瘻、膀胱直腸瘻などの合併例も報告されている⁷⁾。上部尿路異常として本邦148例中同側腎尿管欠損2例、対側重複腎盂尿管1例と対側發育不全腎1例の報告がある⁵⁾。Pearman¹⁵⁾ (1961)も単睾丸症に同側の腎欠損をとまなうのは症例の5%以下であると述べている。

つぎに本症の発生原因について検討をおこなった。胎性期辜丸は導管系の分化に重要な働きを示す。すなわち副辜丸、精管、射精管および精囊の發育分化のためのテストステロンと Müller 管の退縮のための Müller 管抑制物質の分泌であり、正常の男子内性器を形成するためには胎性3カ月頃までは胎性期辜丸が存在し、かつ正常に機能する必要がある¹⁶⁾。したがって、井川らのⅠ型やⅡ型およびⅢ型の中で精囊の存在する症例では同側辜丸が発生しなかったとは考えにくく、辜丸は発生したものの二次的に変性消失したと考える方が妥当である。また、辜丸および精路がすべて

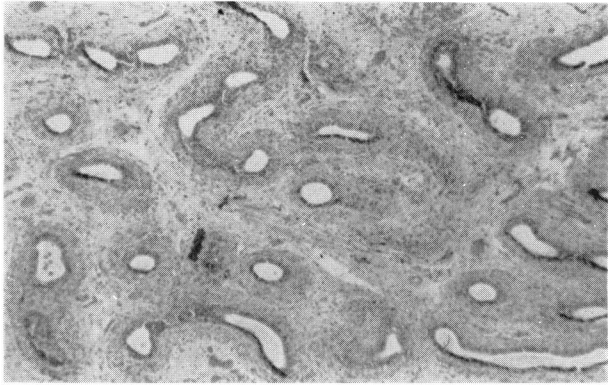


Fig. 2. Histological appearance of the removed nodular tissue. Poorly developed epididymal ducts are present but no testicular tissue was found. (H.E. $\times 40$)

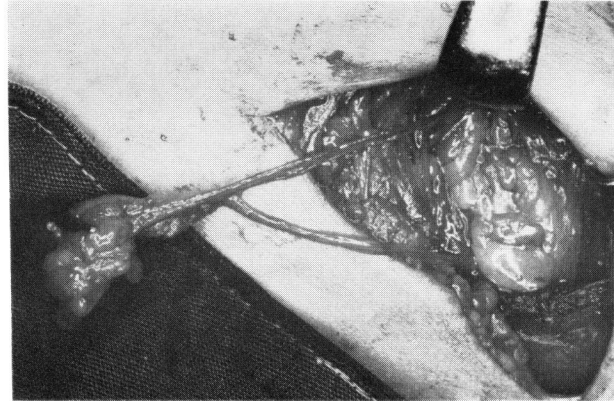


Fig. 3. Case 2. Both of the vas deferens and spermatic vessels terminated into a nodular tissue

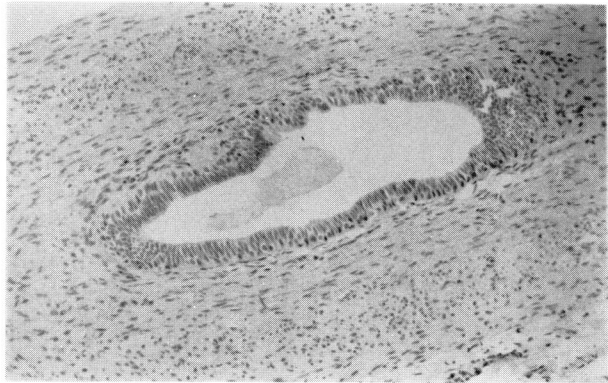


Fig. 4a. Case 2. Histological examination of the removed tissue revealed the vas deferens. (H.E. $\times 100$)

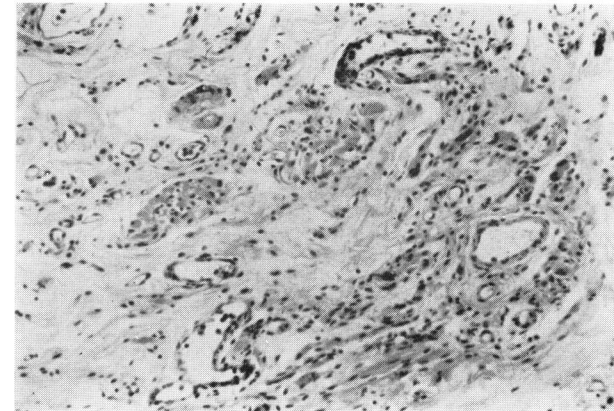


Fig. 4b. Case 2. Histologically, the nodular tissue was composed of connective tissue and many engorged vessels. (H.E. $\times 40$).

欠損している症例でも Müller 管の発育・分化を認めないので睾丸が発生したことが推定される。しかも本症では精管が結合組織の小塊で終わっている例が多く存在し¹⁷⁾、病理組織学的には睾丸組織は認められないものの変性した睾丸組織の痕跡である可能性を完全には否定しきれない。ただし、同側精路と尿路の欠損を認める症例では中腎管を含む尿生殖稜の広範な異常が生じたと推定される。

睾丸が変性消失する具体的な原因についてはあきらかではないが、血行障害、梅毒などの炎症、胎児の外傷、胎児の内分泌異常などが考えられており⁶⁾、Goldberg ら²⁾は胎性7～9カ月頃に精索捻転による血管の閉塞がもっとも可能性の高い原因であると述べている。

陰嚢内容の空虚を主訴として来院した患者については、停留睾丸、睾丸転位あるいは睾丸欠損症かを鑑別診断することは重要である。Hellerら¹⁸⁾、Bowelsら¹⁸⁾は剖検以外では睾丸の欠損を断定できないし、Levittら¹⁹⁾は精管あるいは副睾丸のみが存在するからといって睾丸の欠損とは診断できないと主張している。しかし Counseller ら¹⁴⁾は精路が存在していれば睾丸は極端な異所性部位にはないと述べ、Badenoch¹⁹⁾も睾丸と精路はたとえ分離していても同一手術野内に両者とも存在すると述べている。事実副睾丸と睾丸の‘non-union’症例で両者の間が10 cm以上離れていることが少ないことと、睾丸の欠損と診断するには十分に後腹膜腔の検索がおこなわれるべきであるが、対象が小児の場合が多く、あまりに広範囲の検索は手術侵襲が大きくなることから、自験例では内鼠径輪付近、腹腔内および一部後腹膜腔の検索にとどめてもよいとする中島ら²³⁾、石戸ら⁶⁾の意見に従って検索をおこない最終的な診断を下した。

しかし、Kogan ら²⁴⁾は10年前に両側睾丸欠損症と診断されながら、ゴナドトロピンが除睾例より低値でテストステロンが高値であり、hCG テストでテストステロンが上昇したため再手術を施行したところ右睾丸が存在した症例を報告し、Brother ら²⁵⁾は腹部停留睾丸から発生した睾丸腫瘍12例中4例は、発症前睾丸欠損症と診断されていたと報告し、睾丸が存在しても見落とす可能性を示唆している²⁶⁾。これにたいし Amin ら²⁷⁾は選択的 testicular venography が腹部停留睾丸の局在診断に有用であると述べ、Weiss ら²⁸⁾も testicular venography は安全な手技であり、術前に睾丸の局在診断をつければ手術時検索すべき範囲を特定できると主張し、前述の Kogan らも testicular venography で右睾丸の存在を術前確認しており、

今後われわれも前述の範囲内で睾丸を確認することが困難な場合選択的 testicular venography を併用することが、睾丸欠損の確実な診断の近道の1つではないかと考えた。

結 語

過去10年8カ月間に埼玉医科大学泌尿器科において経験した20例の単睾丸症につき統計的観察をおこない、本症の頻度、患側、合併症、原因、診断法などについて若干の文献的考察をおこなった。

稿を終るにあたり御協力頂いた本学宮崎洋美氏ならびに横浜市立大学泌尿器科大島博幸教授に深謝致します。また本論文の要旨はその一部を第27回不妊学会総会において発表した。

文 献

- 1) Gruber W: 13) より引用
- 2) Goldberg LM, Skaist LB and Morrow JW: Congenital absence of testes: anorchism and monorchism. *J Urol* **111**: 840～845, 1974
- 3) 井川欣市・島村昭吾・安達 徹: 同側腎・尿管欠損症を伴った先天性偏側睾丸欠損症. *臨床皮泌尿* **19**: 1317～1321, 1965
- 4) 小林 豊: 先天性睾丸欠損症及び副睾丸輸精管欠損症に就て. *体性* **26**: 421～429, 1939
- 5) 吉本 純・高田元敬・藤田幸利: 単睾丸症の9例. *西日泌尿* **40**: 77～82, 1978
- 6) 石戸則孝・赤枝輝明・大橋輝久・松村陽右・大森弘之: 単睾丸症の臨床—単睾丸症9例を中心とした文献的考察—. *西日泌尿* **41**: 671～675, 1979
- 7) 松下鋈三郎・白井将文・加賀山 学・一条貞敏・竹内陸男・佐々木桂一: 単睾丸症の2例. *臨泌尿* **22**: 699～703, 1968
- 8) 布施秀樹・皆川秀夫・片海善吾・川村健二・相川英男・伊藤晴夫・島崎 淳: 単睾丸症の臨床. *日不妊会誌* **27**: 657, 1982
- 9) Gross RE: Surgical experiences from 1,222 operations for undescended testis. *JAMA* **160**: 634～641, 1956
- 10) Levitt SB, Kogan SJ, Engel RM, Weiss RM, Martin DC and Ehrlich RM: *J Urol* **120**: 515～520, 1978
- 11) Sebileau and Descomps: 13) より引用
- 12) Godard E: 13) より引用
- 13) Rea CE: Congenital anorchia, with a report of six probable cases of monorchia. *Surg*

- 4 : 376~383, 1936
- 14) Counseller VS, Nichols DR and Smith HL: Congenital absence of testis. *J Urol* **44** : 237~241, 1940
- 15) Pearman RO: Congenital absence of the testicle: monorchism. *J Urol* **85** : 599~600, 1961
- 16) 木川源則: 生殖腺分化機構(1)一性染色体をめぐって一. *医学のあゆみ* **116** : 4~14, 1981
- 17) Fleet RH: Congenital anorchia. *Brit J Urol* **8** : 141~143, 1936
- 18) Burns E, Segaloff A, Carrera GM and Colbert DW: Congenital absence of gonads: report of 2 cases. *J Urol* **89** : 450~455, 1963
- 19) Badenoch AW: Failure of the urogenital union. *Surg Gynec Obst* **82** : 471~474, 1946
- 20) Dean AL, Major JW and Ottenheimer EJ: Failure of fusion of the testis and epididymis. *J Urol* **68** : 754~758, 1952
- 21) Michalek HAL and Krepp J: Failure of urogenital union with secondary amputation of the epididymal tail: a case report complete review of the literature. *J Urol* **107** : 436~439, 1972
- 22) Nowak K: Failure of fusion of epididymis and testicle with complete separation of the vas deferens. *J Pediat* **7** : 715~716, 1972
- 23) 中嶋和喜・中下英之助・大川光央・黒田恭一: 辜丸欠損症の12例. *泌尿紀要* **26** : 1423~1426, 1980
- 24) Kogan SJ, Shah KA, Levin J, Zumoff B, Barzel U, Kream J, Smey P and Levitt SB: Retained undescended testis in a 51-year-old anorchic man: the implications of endocrine evaluation in the adult male with impalpable testes. *J Andro* **3** : 52~57, 1982
- 25) Brothers LR, Weber CH and Ball TP: Anorchism versus cryptorchidism: the importance of a diligent search for intra-abdominal testes. *J Urol* **119** : 707~708, 1978
- 26) Marshall CA: Complete unilateral wolffian duct agenesis with homolateral cryptorchism: a case report, its explantation and treatment: the mechanism of testicular descent. *J Urol* **72** : 685~692, 1954
- 27) Amin M and Wheeler CS: Selective testicular venography in abdominal cryptorchidism. *J Urol* **115** : 760~761, 1976
- 28) Weiss RM, Glickman MG and Lytton B: Venographic localization of the non-palpable undescended testis in children. *J Urol* **117** : 513~515, 1977

(1983年1月26日受付)