

陰囊内臓器付属器（垂）捻転症の4例

昭和大学医学部泌尿器科学教室（主任：今村一男教授）

櫻井 秀樹・小川 肇・桧垣 昌夫・吉田 英機・今村 一男

TORSION OF APPENDIX OF TESTIS AND
EPIDIDYMIS: A REPORT OF 4 CASESHideki SAKURAI, Hajime OGAWA, Yoshio HIGAKI,
Hideki YOSHIDA and Kazuo IMAMURA*From the Department of Urology, Showa University, School of Medicine
(Director: Prof. K. Imamura)*

We report our clinical and pathological observations on four patients with torsion of appendix testis or epididymis, and reviewed 72 cases of torsion of the appendages of intrascrotal organs collected from the Japanese literature; 35 cases of torsion of appendix testis, 36 cases of torsion of appendix epididymis and 1 case of torsion of paradidymis.

Case 1 was a 10-year-old boy visiting us because of pain and swelling in his right scrotum continuing for the past ten days. His right scrotum was found to contain a hen-egg sized tender mass. The testis and epididymis could not be differentiated by palpation. The blood count disclosed 10,000 white blood cells. At operation, two appendix epididymis were found in his right scrotum. One of them was twisted 360 degrees clockwise and 10×8×5 mm in size.

Case 2 was a 11-year-old boy with complaint of pain in his left lower abdomen and left scrotum for the past three days. Palpation of his left scrotal contents revealed a slightly hard testis and tender epididymis. At operation, we found his left spermatic cord to be twisted 90 degrees counterclockwise and appendix epididymis 180 degrees counterclockwise. The twisted appendix epididymis was 10×8×7 mm in size.

Case 3 was a 13-year-old boy whose complaint was left scrotal pain. The upper pole of his left testis was found to be swollen and tender by palpation. The exposure of his left scrotum at operation revealed that his left epididymis was abnormally attached to his left testis and had two appendices. One of these appendix epididymis was twisted 180 degrees clockwise and measured 10×10×8 mm.

Case 4 was a 19-year-old male who suffered from right testicular pain for the past seven days. He had a history of three intermittent episodes of similar right testicular pain during the past two years. His right testis was enlarged and palpated slightly hard and tender. We explored his right scrotum surgically and found the appendix testis twisted and enlarged to little-finger's head size. However, it was impossible to determine whether the rotation was clockwise or counterclockwise because the twisted appendix was too severely damaged.

The preoperative diagnosis was correct in one case and three were erroneously diagnosed as having torsion of spermatic cord. All four cases were treated by surgery which relieved all patients of discomfort.

Key words: Torsion of the appendages of intrascrotal organs, Appendix testis, Appendix epididymis, Paradiidymis, Vas aberrans

緒 言

陰嚢内臓器付属器捻転症は少なくない疾患と言われているが、本邦では、現在まで自験例の睾丸垂捻転症1例、副睾丸垂捻転症3例の計4例を加えても、睾丸垂捻転症は、井上¹⁾の報告以来35例 (Table 1)、副睾丸垂捻転症は、小林²⁾の報告以来36例 (Table 2)、三橋ら³⁾の報告した睾丸傍体捻転症1例の合計72例にすぎない。ここにこれら4例の自験例を報告するとともに、陰嚢内臓器付属器捻転症の本邦72例の集計をおこない、若干の文献的考察をおこなった。

症 例

症例1

患者：青○和○，10歳，小学生

主 訴：右陰嚢部疼痛および腫脹

既往歴および家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1975年7月16日朝，突然，右陰嚢部の疼痛と腫脹が出現したが，消化器症状，尿路症状はなく，発熱などの全身症状も見られなかった。某医にて，治療をうけ一時疼痛は軽快したが，再び疼痛，腫脹とも増強してきたため，紹介され7月26日当科に来院，右睾丸捻転症の疑いにてただちに入院となった。

現 症：体格，栄養状態は正常で，理学的に頭部，頸部，胸部，腹部，四肢，陰茎，左側睾丸，副睾丸，精索に異常はなかった。右側の睾丸と副睾丸は，一塊として触れ，鶏卵大となっており，圧痛が著明であった。左右とも陰嚢皮膚は正常，Prehn 徴候は陰性で，透光性は認めなかった。

検査成績：尿所見は正常。血液一般検査では，白血球数は10,000と軽度に増加していたが，赤血球数は 475×10^4 ，ヘマトクリット値は39%，血色素量は13.3 g/dl で正常，血液生化学検査も正常であった。

手術所見：腰椎麻酔下に右陰嚢を切開した。睾丸に異常はなかったが，副睾丸に軽度浮腫があり，副睾丸頭部前面より睾丸前面を被うように有茎性小指頭大(10×8×5 mm)の暗赤褐色の副睾丸垂が突出し，時計方向に360度捻転していた。他に米粒大の正常副睾丸垂1個が存在し，両者とも結紮切除した。

病理組織所見：出血壊死の像を呈していた (Fig. 1)。

症例2

患者：八○正○，11歳，小学生

主 訴：左陰嚢部疼痛

既往歴および家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1976年7月13日左陰嚢部に疼痛が出現したため翌日某医を受診，睾丸炎の疑いにて，当科を紹介され16日に来院，左睾丸捻転症の疑いにてただちに入院となった。

現 症：体格，栄養状態は良好。理学的に頭部，頸部，胸部，腹部，四肢に異常なく，陰茎は仮性包茎で，右睾丸，副睾丸，精索は異常なかった。左睾丸はやや硬く，軽度腫脹，副睾丸には圧痛があった。また精索には異常はなかった。Prehn 徴候は陰性で，透光性も認めなかった。

検査成績：尿所見は正常で，血液一般検査，血液生化学検査ともに異常はなかった。

手術所見：腰椎麻酔下に左陰嚢を切開した。精索は時計と逆方向に約90度捻転しており，睾丸は硬くやや腫脹していた。副睾丸頭部前面には暗赤褐色壊死状の副睾丸垂(10×8×7 mm)があり，時計と逆方向に180度捻転していた。精索を正常位に整復すると，睾丸の腫脹は消失し，硬さも正常に復した。副睾丸垂は根部で結紮切除，同時に Winkelmann 手術と睾丸固定術を施行した。つぎに右陰嚢を切開した。睾丸，副睾丸は正常であったが，睾丸上部前面に睾丸垂(2×2×2 mm)を認めたため，結紮切除した。

病理組織所見：出血壊死の像であった。

症例3

患者：新○範○，13歳，中学生

主 訴：左陰嚢部痛

既往歴：1歳のとき右外鼠径ヘルニアにて手術，11歳のとき虫垂切除術，13歳のとき鼻中隔彎曲症にて手術した。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1977年7月31日朝，左陰嚢部につかまれているような感じの疼痛が出現，某医よりの紹介にて同日来院した。来院時37℃の発熱あり，左急性副睾丸炎または陰嚢内臓器付属器捻転症の疑いにて入院となる。

現 症：体格，栄養状態は正常。理学的に頭部，頸部，胸部，腹部，四肢に異常所見なく，陰茎は仮性包茎であった。右側の睾丸，副睾丸，精索は異常なかった。左側は睾丸は異常ないが，副睾丸頭部は軽度腫脹し，圧痛とやや熱感があった。精索は正常。

検査成績：尿所見は正常。血液一般検査，血液生化学検査ともに異常なし。

入院後の経過：入院直後より38℃代の発熱を認め，

Table. 1 辜丸垂捻転症

症例	報告者	発表年次	年齢	患側	臨床症状	術前診断※	垂の大きさ (mm)	捻転方向・捻転度	治療
1	井上	1933	33	左	左陰嚢部～下腹部痛, 陰嚢発赤腫脹, 発熱, 頻尿, 嘔吐	捻転症	15×12×5	時計360°	摘除術
2	増田	1933	21	左	左辜丸部痛・腫脹, 下腹部痛, 悪心	〃	7×6		摘除術, Winkelmann
3	土屋・ほか	1957	10	右	右辜丸部激痛, 陰嚢発赤	〃	7×2～3	不明	摘除術
4	森・水口	1958	13	左	発熱, 左辜丸部激痛→左陰嚢部痛・腫脹	急性副辜丸炎	12×2		摘除術, Winkelmann
5	喜多・ほか	1960	28	左	左陰嚢部痛	捻転症	8×6×6	不明	摘除術
6	巾・ほか	1962	25	右	右辜丸部激痛	〃	12×9×6	不明	〃
7	駒瀬・ほか	1969	8	左	左辜丸部痛・腫脹	〃			〃
8	〃	〃	15	左	左辜丸部痛・腫脹	〃			〃
9	今村・ほか	1970	10	左	左辜丸部痛, 左下腹部痛	辜丸捻転症	小豆大	不明	〃
10	〃	〃	11	右	右辜丸部接触痛	捻転症	小豆大	不明	〃
11	牧野・ほか	1972	47	左	左辜丸部痛		3×3		〃
12	大室・藤枝	1972	10	右	辜丸部痛→右陰嚢部痛		小豆大	540°	〃
13	兼田・ほか	1974	10	右	右陰嚢部痛	捻転症			〃
14	加藤・ほか	1974	12	右	右陰嚢部痛			180°	〃
15	大熊・ほか	1976	14	左	左下腹部～左辜丸部激痛	捻転症	11×3×3	反時計180°	〃
16	〃	〃	12	左	左陰嚢部痛	〃	5	時計180°	〃
17	松岡・ほか	1976	28	右	右側腹部痛→右陰嚢部痛	〃	5	反時計180°	〃
18	〃	〃	20	左	左側腹部痛→左陰嚢部痛	〃	10	時計180°	〃
19	藤井・白石	1977	10	左	左辜丸部激痛・腫脹	辜丸捻転症			〃
20	大野・ほか	1979	11	左	左辜丸部痛, 左陰嚢部圧痛	捻転症		時計720°	〃
21	千野・ほか	1979	12	右	右辜丸部痛	辜丸捻転症	大豆大	時計180°	〃
22	〃	〃	9	左	左陰嚢部痛	捻転症	小豆大	反時計360°	〃
23	〃	〃	23	右	右下腹部～右辜丸部痛	〃	大豆大	不明	〃
24	広本・ほか	1980	10	左	左辜丸部痛				〃
25	〃	〃	11	左	左辜丸部痛				〃
26	青山・ほか	1981	11	左	左辜丸部痛, 陰嚢発赤	辜丸捻転症		反時計	〃
27	〃	〃	9	右	右陰嚢部痛	捻転症	8×6×5	時計	〃
28	〃	〃	9	左	左陰嚢部痛・発赤, 左下腹部痛	辜丸捻転症		不明	〃
29	石川・ほか	1981	10	右	右陰嚢部圧痛, 有痛性腫瘤触知	〃		反時計360°	摘除術, 辜丸固定術
30	安食・中村	1982	10	右	右陰嚢部痛・腫脹	〃			摘除術
31	工藤・ほか	1982	10	左	左辜丸部痛	〃		不明	〃
32	〃	〃	10	左	左辜丸部痛	捻転症			保存的治療
33	千葉・加藤	1982	12	右	右辜丸部痛				摘除術
34	〃	〃	54	右	右陰嚢腫脹				〃
35	自験例	1983	19	右	右辜丸部痛	辜丸捻転症	小豆大	不明	〃

※捻転症：辜丸垂捻転症

Table. 2 副 睾 丸 垂 捻 転 症

症例	報告者	発表 年次	年齢	患側	臨床症状	術前診断※	垂の大きさ (mm)	捻転方向・ 捻転度	治療
1	小林	1938	15	左	左睾丸部激痛,頻尿,排尿痛	捻転症	米粒大	不明	摘除術
2	吉野	1938	58	左	左睾丸部激痛・腫脹	睾丸捻転症	鳩卵大	時計270°	除睾術
3	市川・辻	1947	28	右	右睾丸部痛		19×4×6	反時計360°	副睾丸摘除術
4	大越・辻	1947	31	左	左睾丸部痛				摘除術
5	三浦・中西	1961	25	左	左睾丸部痛・下腹部に放散	捻転症	17×7.5×3	反時計180°	〃
6	勝目・川倉	1967	6	右	右陰囊部痛	〃	大豆大	時計180°	〃
7	佐藤	1969	11	右	右陰囊部痛・腫脹			不明	〃
8	内藤・ほか	1975	9	右	右睾丸部激痛		小豆大	時計180°	〃
9	〃	〃	13	右	右陰囊部痛		小豆大	時計240°	〃
10	大熊・ほか	1975	10	右	右陰囊部痛・腫脹	睾丸捻転症	7×6×3	不明	〃
11	〃	〃	10	右	右陰囊部痛・腫脹,単径部痛	〃	5×4×2	時計360°以上	〃
12	〃	〃	9	右	右陰囊部痛・腫脹,下腹部痛	睾丸捻転症不全型	5×4×2	時計180°~360°	〃
13	中川・上野	1975	9	左	左睾丸部痛・腫脹	睾丸捻転症	大豆大	不明	〃
14	竹前・田丸	1976	13	右	右陰囊部痛				〃
15	会田・白勢	1976	8	左	左腹痛→左単径部痛→左陰囊部痛・腫脹	睾丸捻転症不全型	小豆大	不明	〃
16	青山・ほか	1977	7	右	右下腹部痛,右陰囊部腫大	捻転症	5×7	時計360°	摘除術,睾丸固定術
17	中野	1977	12	右	右下腹部痛,右睾丸部痛,悪心	〃	穀粒大		摘除術
18	加藤・堀米	1978	12	右	右下腹部痛→右陰囊部痛・腫脹	睾丸捻転症	10×8	180°	摘除術,Winkelmann
19	〃	〃	12	右	右陰囊部~右下腹部痛	捻転症	6×3	時計180°	摘除術,Winkelmann,睾丸固定術
20	早原・森川	1979	16	左	左陰囊部痛		大豆大		摘除術
21	曾根・戒野	1979	7	右	右陰囊部痛・腫脹	睾丸捻転症	小指頭大	時計180°	〃
22	石川・ほか	1981	31	左	左睾丸上極の疼痛・発赤・腫脹	捻転症	小指頭大		〃
23	〃	〃	40	左		睾丸捻転症			〃
24	青山・ほか	1981	4	左	腹痛→左単径部痛	捻転症	8×7×6	時計360°	〃
25	〃	〃	8	右	右陰囊部痛・腫脹	睾丸外傷	10×5×3	反時計90°	〃
26	〃	〃	10	左	左陰囊部圧痛・腹痛	捻転症	11×6×3	時計360°	〃
27	〃	〃	38	右	右陰囊部痛,右下腹部痛,陰囊内腫瘍激痛	〃	大豆大		一部副睾丸も含め摘除
28	菅田・大川	1981	13	左	左陰囊部痛・圧痛	〃	13×7×4	不明	摘除術
29	安藤・武田	1981	11	左	左陰囊部痛	睾丸捻転症不全型	8×6×3	時計720°	〃
30	安食・中村	1982	7	左	左陰囊部腫脹・圧痛	睾丸捻転症			〃
31	山本・米田	1982	12	右	右陰囊部痛	睾丸捻転症または捻転症		180°以上	〃
32	千葉・加藤	1982	12	右	右陰囊部痛・腫脹			180°	〃
33	〃	〃	11	左	左睾丸部痛			時計360°	〃
34	自験例	1983	10	右	右陰囊部痛・腫脹	睾丸捻転症	10×8×5	時計360°	〃
35	〃	〃	11	左	左陰囊部痛	〃	10×8×7	反時計180°	摘除術,Winkelmann,睾丸固定術
36	〃	〃	13	左	左陰囊部痛	急性副睾丸炎または捻転症	10×10×8	時計180°	摘除術,睾丸固定術

※捻転症:副睾丸垂捻転症

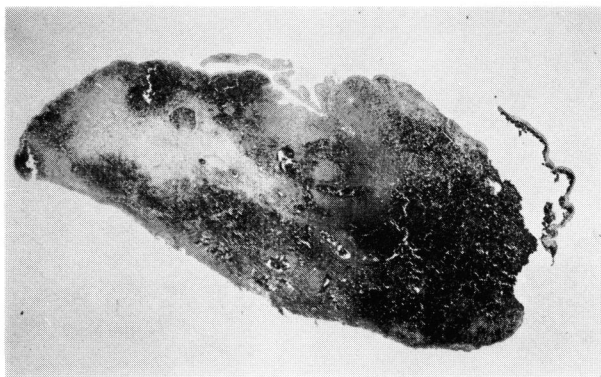


Fig. 1 Case 1, section of appendix epididymis, showing thrombosed blood vessels and liquefaction necrosis. Hematoxylin and Eosin. $\times 20$

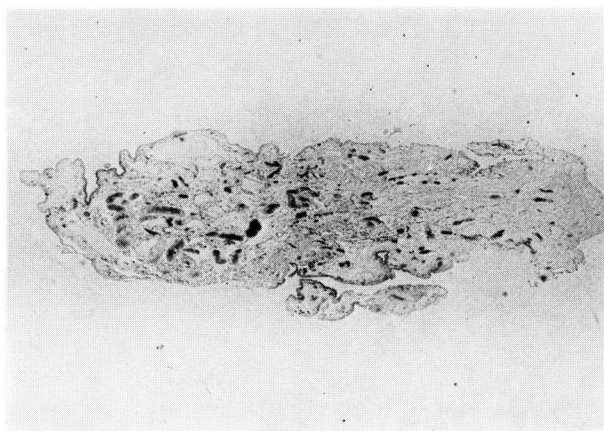


Fig. 2. Case 3, section of appendix epididymis, showing edema and hemorrhage and thrombosed blood vessels. Hematoxylin and Eosin. $\times 20$

咽頭痛、嘔吐などの症状もあったが、家族が手術を希望しないため、冷湿布と化学療法にて様子を見ることとした。翌日夕には、陰嚢部痛は消失し、発熱は3日後におさまったが、その後も時々、37℃代の発熱が出現した。解熱後、再度軽い疼痛が出現したため、8月9日手術を施行した。

手術所見：腰椎麻酔下に左陰嚢を開いた。睾丸は異常ないが、副睾丸頭部前面に、淡赤色の時計方向に180度捻転した副睾丸垂（ $10 \times 10 \times 8$ mm）が存在したので結紮切除した。また睾丸上部前面に正常睾丸垂を1個認めたので、結紮切除した。同時に、副睾丸の付着異常を認めたため、睾丸固定術を施行した。同様にして、右陰嚢を開き3個の正常睾丸垂を結紮切除するとともに、副睾丸の付着異常を認めたので、睾丸固定術を施行した。

病理組織所見：組織の充血、間質の浮腫および出血

壊死の像を示した（Fig. 2）。

症例4

患者：古○文○，19歳，会社員

主訴：右睾丸部痛

既往歴および家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1982年3月23日頃右睾丸部痛出現し、疼痛が持続するため、3月30日来院した。消化器症状、尿路症状、発熱などの全身症状はなかった。1980年1月、81年3月、81年7月の3回、今回と同様の右睾丸部痛があったが、1日でおさまったという。右睾丸捻転症の疑いにて入院となった。

現症：体格、栄養状態正常。理学的に頭部、頸部、胸部、腹部、四肢に異常所見はなかった。陰茎は仮性包茎で、左側の睾丸、副睾丸、精索には異常なく、また右側の副睾丸、精索は異常ないが、睾丸は軽度腫脹し、やや硬く触れ、圧痛があった。Prehn徴候は陰性

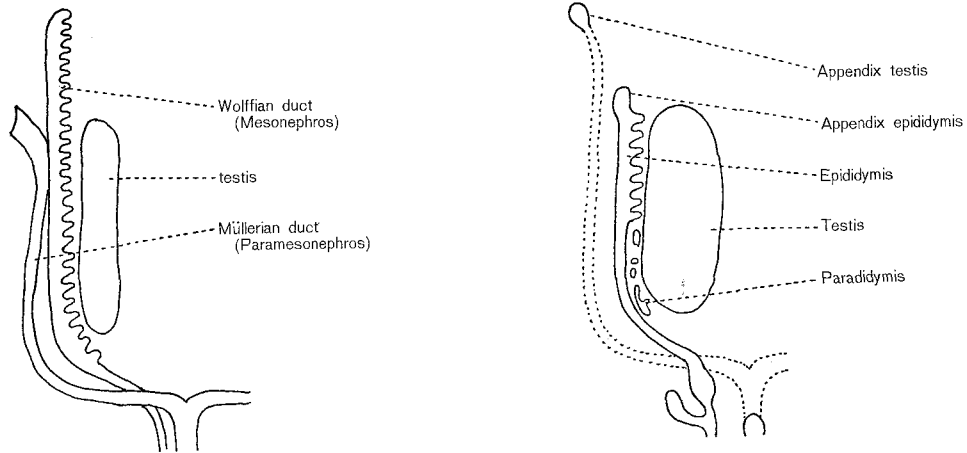


Fig. 3. Schematic representations of embryonal gonad, Müllerian duct and Wolffian duct and origin of appendages of intrascrotal organs

で、前立腺は正常。

検査成績：尿所見は正常で、血液一般検査、血液生化学検査はともに異常なし。

手術所見：腰椎麻酔下に右陰嚢を切開した。睾丸、副睾丸は正常であったが、睾丸上部前面に暗赤褐色小指頭大の睾丸垂が存在したが、変化が強かったので捻転方向、捻転度は不明であった。これを結紮切除した。また2個の正常副睾丸垂が存在していたので、これも結紮切除した。

病理組織所見：出血壊死の像を示した。

考 察

陰嚢内臓器付属器は睾丸垂 (appendix testis)、副睾丸垂 (appendix epididymis)、睾丸傍体 (paradidymis)、迷管 (vas aberrans) の4つに分類されるが、すべて胎生期の遺残物で、睾丸垂は Müllerian duct (paramesonephros) の頭側端の遺物で、睾丸の前面上部、まれに下部に存在し、副睾丸垂は Wolffian duct (mesonephros) の頭部由来で、副睾丸頭部に存在、睾丸傍体は Wolffian duct の尾側部の遺物で、副睾丸頭部付近で精索の下端前面に存在し、迷管も Wolffian duct 尾側部の遺物で、睾丸と副睾丸の境界で副睾丸体部付近に存在する (Fig. 3, 4)。

陰嚢内臓器付属器は、1761年 Morgagni が記載したのが最初だと言われ、睾丸垂と副睾丸垂の病的変化を最初に論じたのは、Ombredanne (1913) と言われている⁴⁾。陰嚢内臓器付属器捻転症のなかで最初に報告されたのは睾丸垂捻転症で (1922年 Colt⁵⁾)、以後、副睾丸垂捻転症は 1925年 Chaton⁶⁾ によって、睾丸傍

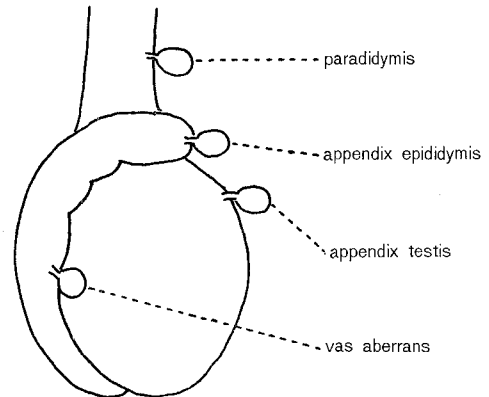


Fig. 4. Position of appendages of intrascrotal organs is demonstrated

体捻転症は1927年 Michel⁷⁾ によって、迷管捻転症は、1929年 Solier & Huard によってそれぞれ初めて報告された。その後、欧米では Dix⁸⁾ (1931), Randall⁹⁾ (1939), Fitzpatrick¹⁰⁾ (1958), Litvak¹¹⁾ (1964), Edman¹²⁾ (1966), Skoglund¹³⁾ (1970) などにより報告がおこなわれ、現在では、合計300例以上となっている。本邦では、睾丸垂捻転症は1933年井上¹⁾ が、副睾丸垂捻転症は1938年小林²⁾ が最初に報告しているが、睾丸傍体捻転症は1978年三橋ら³⁾ により1例報告されているのみで、迷管捻転症は現在まで1例も報告されていない。

1) 発生頻度

陰嚢内臓器付属器は86¹⁴⁾~96¹⁵⁾ %の人に存在し、睾丸垂は79¹⁶⁾~92¹⁷⁾ %, 副睾丸垂は21¹⁶⁾~54¹⁵⁾ %に存在しているが、睾丸傍体、迷管は少ないとされている。睾丸垂で、捻転を起こしうる有茎性のものは74

(61)¹⁵⁾～82¹⁷⁾%、副睾丸垂では81(80)¹⁵⁾～100¹⁷⁾%である。巾ら¹⁵⁾は陰嚢内臓器付属器を5型に分類しているが、I型は長さ2～10mmで細い茎をもち、先端が球状または嚢腫状を呈するもの、II型は長形であるが、比較的広基性で皺壁があり、先端はやや膨大するものや扁平舌状のものとなっているが、I型だけを有茎性とする()内の数値となる。陰嚢内臓器付属器の数¹⁵⁾は、1人につき最多は7個だが、2～3個存在するものが全体の約60%を占めている。

青山ら¹⁸⁾は、本邦において8例を報告しているが、8年4カ月間の入院患者総数2,401名中男子1,690名の14.9%にあたる252名が陰嚢内容疾患で、男子小児患者は174名(10.3%)の内98名(56.8%)が陰嚢内容疾患である。陰嚢内臓器付属器捻転症は、陰嚢内容疾患の約3%を占め、小児ではその約1割を占めていたという。頻度は睾丸腫瘍、陰嚢内臓器外傷とほぼ同率であり、幼小児の急性陰嚢内容疾患の観点からみると副睾丸炎、睾丸炎、睾丸捻転症、陰嚢内臓器付属器捻転症、外傷などの頻度が高いとしているが、本邦では他の陰嚢内容疾患に比して、陰嚢内臓器付属器捻転症の報告例はかなり少ない。欧米においては、Qvist¹⁹⁾(1955)は、小児において陰嚢腫脹を呈す158例中睾丸垂捻転症は42例(26.5%)、ヘルニア嵌頓61例(39%)、睾丸捻転症9例(6%)、陰嚢浮腫32例(20%)、副睾丸炎12例(7.5%)、睾丸炎2例(1%)であったとしている。Kaplan et al.²⁰⁾(1970)は、小児の急性陰嚢腫脹の68例のうち、陰嚢内臓器付属器捻転症23例(34%)、睾丸捻転症25例(36%)、副睾丸炎8例(12%)、睾丸炎7例(10%)、その他5例(7%)は睾丸外傷、ヘルニア、急性陰嚢水腫であったとしている。Hemalatha et al.²¹⁾(1981)は、小児の急性陰嚢内容疾患69例中38例(55%)が陰嚢内臓器付属器捻転症で、睾丸捻転症は15例(22%)、特発性陰嚢浮腫9例(13%)、副睾丸炎7例(10%)であるが、4～11歳に限ってみると47例中36例(77%)が陰嚢内臓器付属器捻転症であったとしている。このように現在欧米では、小児の陰嚢内容疾患では、陰嚢内臓器付属器捻転症はかなり頻度の多い疾患となっている。

陰嚢内臓器付属器捻転症に関しては、欧米では、Skoglund et al.¹³⁾(1970)が309例を集計しているが、睾丸垂捻転症は285例とその92%を占め、副睾丸垂捻転症21例の13.5倍も多くなっている。睾丸傍体捻転症は2例、迷管捻転症は1例となっているが、現在までの集計でも両者とも5例以下である。いっぽう、本邦では現在まで、睾丸垂捻転症35例、副睾丸垂捻転

症36例と、ほぼ同数である。この欧米と本邦との違いは興味あるところであるが、理由は不明である。

2) 年齢

本邦では4～58歳、平均年齢は14.9歳で、9～13歳がもっとも多く全体の約60%を占めている(Fig. 5)。Skoglund et al.¹³⁾やEdman et al.¹²⁾の集計では10～13歳、Rose et al.¹⁶⁾は11～16歳、Dix⁸⁾は11～14歳がもっとも多いと述べている。本邦では4歳が最年少だが、欧米では生後11週⁴⁾など、4歳以下の報告例も多い^{8,13,21-25)}。本邦では最年長は58歳だが、欧米では60歳以上の報告例²⁶⁾もある。しかし、50歳以上の症例はほとんどないと言ってよい。いずれにしても、思春期とその前後に発症することが多いと考えられる。

3) 患側

本邦では睾丸垂捻転症は、右側16例、左側19例、副睾丸垂捻転症は、右側19例、左側17例、睾丸傍体捻転症は右側1例で、陰嚢内臓器付属器捻転症としては、右側36例、左側36例と左右同数である。Skoglund et al.¹³⁾の集計でも、患側のわかっている244例では、左右同数であったとしている。また両側例について本邦ではいまだ報告はないが、欧米では8例ほど報告^{16,27)}されている。

4) 発症機転(誘因)

誘因は種々論ぜられているが、そのうちのひとつとしてOeconomopoulos et al.²⁸⁾は陰嚢内臓器付属器捻転症をathletic injuryとしている。彼らは26例中20例(77%)がathletic activity、すなわち水泳、アイススケート、テニス、バスケットボール、ボーリング、サッカーなどをおこなったことにより起きているとしている。Edman et al.¹²⁾は121例中29例(24%)にスポーツや遊戯中、陰嚢打撲などの誘因があったと述べている。本邦の症例からみると、誘因があったと考えられる症例は20例で、誘因なしとするもの21例、記載のないもの31例である。その誘因としては、スポーツや遊戯中が一番多く、他に陰嚢打撲、重量物の挙上時などがある。しかし安静時や就寝中に起こっている症例も多いので、本症をすべてathletic injuryとするのは問題があるが、少なくとも一部の症例では、直接あるいは間接的な外力が誘因となっているようである。

睾丸、副睾丸などの陰嚢内臓器は、陰嚢の動きにもなってそのなかで位置が移動する。土屋ら²⁹⁾は、原因として急激な拳拵筋反射の異常亢進を挙げているが、拳拵筋反射は日常しばしば起こる反射であり、陰嚢は外性器で、就寝中、安静時でも、大腿にはさまれて圧

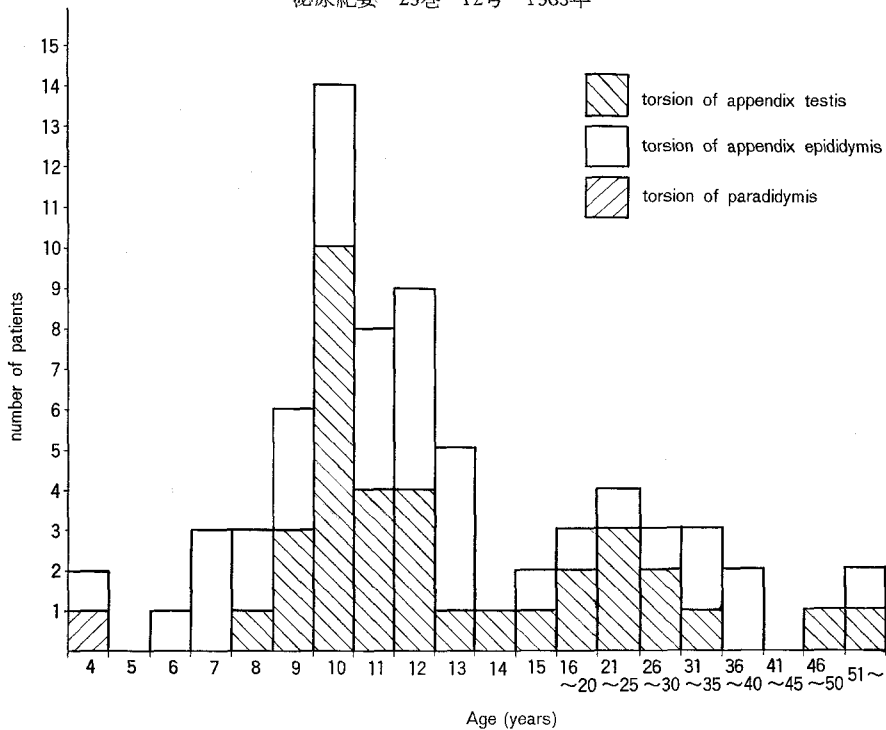


Fig. 5. Age distribution

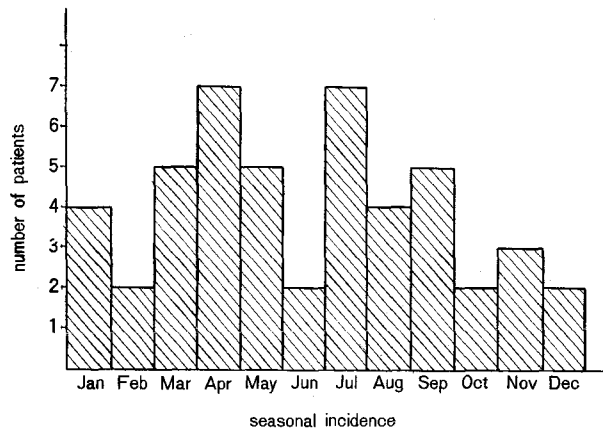


Fig. 6. Seasonal incidence of torsion of the appendages of intrascrotal organs

迫、打撲を受けるなど外力を受けやすい位置にあるため、茎を持つ陰嚢内臓器付属器が存在すれば、容易に捻転が起こりうることは想像がつく。しかし、茎捻転が起こっても、多くは短時間で自然に整復され疼痛はおさまるため、み過ごされることが多い。このことは自験例にもあるように、前駆症状とも言えるような睾丸部痛を既往に有する症例があり、たとえば、井上¹⁾の例では11年前より、小林²⁾の例では1年前に、増田³⁰⁾の例では4年前より、吉野³¹⁾の例では30~40年前より、大越³²⁾の例では15年前より、過去1回ある

いは年に何回か睾丸部痛のあったことを認めている。また、Randall⁹⁾は、睾丸組織の急速な発育増大が原因だと述べている。

季節的には、Oeconomopoulos et al.²⁸⁾は athletic injury という考えから、学校が休みである7~8月に多いとしている。本邦では、発症時期のわかっている48例からみると、3~5月、7~9月に多いようである (Fig. 6)。

5) 臨床症状

捻転の程度と発病からの時間によって症状もさまざ

まに変化してくるが、大部分の症例では、睪丸部痛を訴える。一部の症例では、下腹部痛、鼠径部痛が初発し、しだいに陰嚢部へと移動して、最終的には睪丸部痛となるものもあるが、睪丸上極部に限局した疼痛を訴える症例も存在する。疼痛の強さは、睪丸捻転症の際にみられるほど強くはないとされるが、なかには激痛を訴える症例もあり、本邦では、睪丸垂捻転症で7例、副睪丸垂捻転症で4例の計11例（15%）が激痛を訴えたと記されている。激痛を訴えたとする率は、報告者によってかなり差があるが、Skoglund et al.¹²⁾は激痛を訴えたもの6%、中間のもの55%、弱い疼痛のもの39%としている。Hemalatha et al.²¹⁾は睪丸捻転症では82%、陰嚢内臓器付属器捻転症では22%が激痛を訴えたとしている。他に前述したように、睪丸部痛の既往を有する症例もある。睪丸部痛のほか、同部の圧痛はもちろんであるが、同時に陰嚢の発赤腫脹を訴えることが多いが、まれに、無痛性の陰嚢腫脹を訴えて来る例もある。

通常は、頻尿、排尿痛などの尿路症状はともなわず、尿所見に異常を認めないと同様、その他の血液・生化学的検査も正常であるし、嘔気、嘔吐などの消化器症状、熱発などの全身症状をともなった症例もまれである。Mouchet は、軽症例（mild type）に比して激しい全身症状つまり、悪心、嘔吐、下腹部に放散する激痛、発熱、白血球増多などを来し、ときにショックに至るような症例を“severe or classical type”と呼んでいるが、本邦ではそのような症例ははまだ報告されていない。

6) 局所所見

Edman et al.¹²⁾、Fitzpatrick¹⁰⁾など欧米文献の多くは、発病初期は、睪丸上極部付近に、普通は圧痛のある有痛性、ときに無痛性の腫瘤を触知し、この腫瘤が移動性であればなお診断は確実であるとしている。同時に、大人では陰嚢皮膚が厚いためまれであるが、小児では陰嚢皮膚が薄く、その上色素が少ないので、表面から陰嚢内臓器付属器を透見する（blue dot sign）こともある。そして睪丸、副睪丸、精索に圧痛はないとしているが、本邦では、発病初期でも睪丸あるいは睪丸上極部には圧痛をみる人が多いようである。本邦においては腫瘤を触知したもの31例（47%）、腫瘤を透見したもの7例（10%）であった。Edman et al.¹²⁾は22%に腫瘤を触知したとしている。

時間を経ると、陰嚢皮膚が発赤浮腫を起こし、陰嚢内容も腫脹し、睪丸・副睪丸は一塊として触れ、区別が不能となることも多い。この時に疼痛のためよく触診できない場合は、精索に麻酔をした方が良い場合も

ある^{33,34)}。Hemalatha et al.²¹⁾によると陰嚢内臓器付属器捻転症は、実際には症状が激しくないことが多いので、睪丸捻転症では発症より受診までの時間が0～12時間で56%が受診しているのに対し、陰嚢内臓器付属器捻転症では13%、48時間以内でも32%の受診率である。このことが、診断を困難にする原因ともなっている。Litvak et al.¹¹⁾は48～64時間後までは睪丸水腫は診断を困難にするほどの量にはならないとしている。本邦の症例でみると、有痛性腫瘤、可動性有痛性腫瘤、睪丸上極部限局性圧痛、blue dotなどを呈したものはほとんど発症後3～4日以内に受診した症例で、これらは一部を除いては陰嚢内臓器付属器捻転症と診断されている¹⁸⁾。このように時間が経過すると、睪丸、副睪丸の区別が不可能となる原因は、反応性睪丸水腫による^{33,35)}とするものが多いが、睪丸水腫とともに、二次的睪丸炎、副睪丸炎にもよる¹⁰⁾とするものもある。青山ら¹⁸⁾は、睪丸固有鞘膜を含めた被膜の炎症性癒着、肥厚が原因だとしている。

精索、睪丸、副睪丸に圧痛、腫脹のあることも多いが、手術所見では、局所触診所見ほど変化がないことが多い。Prehn 徴候は、陽性とするものもいるが、陰嚢内臓器付属器捻転症の徴候とすることに否定的な見解も多い。本邦では、陽性は7例、陰性のもの8例、不明としているもの4例である。

7) 鑑別診断

陰嚢内臓器付属器捻転症と類似の症状を呈する疾患は少なくないが、鑑別すべき疾患としては、急性睪丸炎、急性副睪丸炎、睪丸捻転症、睪丸腫瘍、急性睪丸水腫、睪丸硬塞、睪丸外傷、ヘルニア嵌頓、急性虫垂炎、尿路結石などがあるが、とくにこのなかで問題となるのは、副睪丸炎と睪丸捻転症である。副睪丸炎は、発熱、白血球増多、尿路症状や尿所見が鑑別点となる。睪丸捻転症は、臨床症状だけでは鑑別不能な場合が多いが、発病初期では陰嚢内臓器付属器捻転症は疼痛が比較的軽いこと、圧痛が睪丸上極部に限局している場合、注意深い触診により、有痛性で移動性腫瘤を触知しえた場合、もしくは、陰嚢皮膚を介して暗小体を透見した場合は、比較的容易に診断しうる。最近では超音波ドップラー法³⁶⁻³⁸⁾、睪丸シンチグラム³⁹⁾などによっても鑑別できるようになっている。

本邦では、術前診断が的中したもの30例（55%）、睪丸捻転症としたもの23例（42%）、副睪丸炎としたもの2例、睪丸外傷としたもの1例であるが、的中したもので、初期診断は睪丸捻転症、副睪丸炎としていたものもあり、まして、他科医受診例では、正確な診断をしていたものは皆無に近いようである。欧米で

は、Skoglund et al. によれば、正確に診断しえたのは61%、辜丸捻転症としたもの26%、副辜丸炎としたもの7%であり、Edman et al. は60%が的中で、辜丸捻転症としたもの9%、副辜丸炎としたもの8%であったとしている。

8) 手術所見

陰嚢内臓器付属器捻転症は、手術により診断が確定されることも多い。手術時には辜丸固有鞘膜は炎症を起し肥厚していることも多い。鞘膜内は黄色～血性の滲出液を有し、陰嚢内臓器付属器は発症からの時間により赤色～暗赤褐色、黒色などを呈し、周囲組織と癒着していることもある。また辜丸、副辜丸にも軽度の発赤腫脹などの炎症像の見られることも多い。一般に辜丸垂、副辜丸垂ともに副辜丸頭部付近に存在するものが捻転を起こすことがほとんどであるが、巾ら⁴⁰⁾のように副辜丸尾部に捻転をみた例もある。また、石川ら⁴¹⁾のように2つの副辜丸垂がお互いに絞扼していたり、牧野ら⁴²⁾のように暗赤色血腫状になった副辜丸垂に長い茎をもった淡黄色の辜丸垂が絞扼していた例もある。

固有鞘膜内貯留液中に小結石様の小体 (Corpora libera) を見る⁴³⁾ことは他の陰嚢内手術時にも時々経験することであるが、これは辜丸垂、副辜丸垂の脱落物だと考えられている。合併症として多いのは辜丸水腫であるが、他に自験の辜丸捻転症、停留辜丸⁴⁴⁾、移動性辜丸^{16, 45)}、精子侵襲症¹⁸⁾などが報告されている。

本邦で報告された症例から見ると、垂の大きさは米粒大のものもあるが、ほとんど小豆大～大豆大のものが多く、大きいものでは、吉野³¹⁾の鳩卵大、三浦ら³³⁾の17×7.5×3 mm、井上¹⁾の15×12×5 mmなどとやや大きいものもあるが、巾ら¹⁵⁾の剖検例では、茎の長さが1～10 mm、米粒大～大豆大がもっとも多いとしている。捻転度は、90～720度までの報告があるが、もっとも多いのは180～360度であり、捻転方向は時計方向が多い。

9) 病理組織所見

Arcadi⁴⁶⁾によると辜丸垂と副辜丸垂の組織は異なっているとされているが、一般的には両者の組織像は類似していると考えられており、巾ら¹⁵⁾によると、一層の円柱、低円柱または立方上皮によって覆れた粗な結合織の間質を持ち、間質内には血管、リンパ管や平滑筋線維があり、上皮下には薄い基底膜があり、上皮層は皺壁が多く、陰窩・陰窩状上皮陥凹像を示すものでは、間質内に侵入埋没した被覆上皮と同様の腺管様構造を持つことが多い。茎捻転が起こると、陰嚢内臓器付属器は炎症、硬塞の像を呈する。すなわち、上皮

は症例によっては脱落し、間質は赤血球、顆粒球が浸潤し、浮腫、うっ血があるが、時とともに変性、壊死を起し癩痕化する。慢性化したものでは組織内に石灰化を見ることもある。

10) 治療

以前から、局所の冷湿布、陰嚢挙上、安静などの保存的療法で治療し、手術しなくとも良いとする意見⁴⁷⁾があるが、最近の欧米の文献でも、安静や弱い鎮痛剤の投与で良いとする意見^{48, 49)}が多い。Holland et al.⁴⁸⁾は23例中持続性再発性の疼痛のある3例を除き、他の20例は保存的に治療可能だったと述べている。手術を避けるべきだとする意見は、手術の侵襲と、小児における麻酔の危険性を述べている。しかし、本邦で、保存的療法をおこなったのは、工藤ら⁵⁰⁾の1例だけで、一般には手術がおこなわれているが、その理由として、保存的療法は、たとえ自然整復により治癒しても、それまでのあいだ不快な症状があり、再発の可能性も多いこと、壊死脱落して疼痛発作は起こさなくなっても辜丸水腫の原因となりうることなどであるが、他に、辜丸、副辜丸に二次的变化が起こり、副辜丸の線維化などにより不妊の原因となる可能性もあるとする意見¹⁰⁾もある。その上、手術は簡単に危険もなく苦痛をただちに除去できるし、入院も短期間で済む場合が多いという利点がある。

手術時には、捻転した陰嚢内臓器付属器だけではなく、同側に他の陰嚢内臓器付属器が存在する場合は、同時に摘除すべきである。両側捻転例が存在することや、対側にも陰嚢内臓器付属器が存在することが多いので、予防的に対側の陰嚢内臓器付属器の摘除を勧める意見^{9, 11)}もある。また辜丸水腫を合併する症例が多いので辜丸水腫根治術の併用を勧める意見⁴²⁾もあるが、両者とも通常はおこなわない。まれに、停留辜丸や辜丸捻転症、移動性辜丸をとまなう場合があるが、この場合は辜丸固定術を対側の辜丸にもおこなうことがある。Edman et al.¹²⁾は、手術後1年から10年後の検索では、辜丸、副辜丸に辜丸萎縮など他の病理学的変化は見られなかったとしている。

結 語

4例の陰嚢内臓器付属器捻転症を報告した。1例は辜丸垂捻転症で、年齢は19歳患側は右側であった。3例は副辜丸垂捻転症で、年齢は10歳、11歳、13歳で、患側は順に右、左、右であった。以上の4例に全例陰嚢内臓器付属器摘除術を施行したが、経過は全例とも良好であった。

本邦における陰嚢内臓器付属器捻転症症例72例の集

計をおこない、若干の文献的考察をおこなった。実際には報告されている何倍もの症例がみ過されたり、自然治癒したりしていると思われる。注意深い陰嚢の触診を行えば、本症の診断例は増加するものと思われる。

文 献

- 1) 井上 昇：辜丸水泡體轉振症ノ1例。皮泌誌 33：289~296, 1933
- 2) 小林敏夫：所謂辜丸水泡體轉振症症例追加。體性 25：29~32, 1938
- 3) 三橋公美・松野 正・松下高曉・高村孝夫：辜丸傍体捻転症の1例。臨泌 32：473~475, 1978
- 4) Jones P: Torsion of the testis and its appendages during childhood. Arch Dis Child 37: 214~226, 1962
- 5) Colt GH: Torsion of Hydatid of Morgagni. Brit J Surg 9: 464~465, 1922
- 6) Chaton M: Un cas de torsion de hidatide sessile de Morgagni. Revue med 28: 209~213, 1925
- 7) Madsen PO: Torsion of the paradidymis: A case report. J Urol 81: 299~300, 1959
- 8) Dix VW: On torsion of the appendages of testis and epididymis. Brit J Urol 3: 245~268, 1931
- 9) Randall A: Torsion of the appendix testis (Hydatid of Morgagni). J Urol 41: 715~725, 1939
- 10) Fitzpatrick R J: Torsion of the appendix testis. J Urol 79: 521~526, 1958
- 11) Litvak AS, Melnick I and Leberman PR: Torsion of the Hydatid of Morgagni. J Urol 91: 574~575, 1964
- 12) Edman P and Qvist O: Torsion of the appendix testis: An analysis of 121 cases. Acta Chir Scand 125: 370~375, 1966
- 13) Skoglund RW, McRoberts JW and Ragde H: Torsion of testicular appendages: Presentation of 43 new cases and a collective review. J Urol 104: 598~600, 1970
- 14) 勝目三千人・川倉宏一：副辜丸垂捻転症の1例。臨泌 21：465~469, 1976
- 15) 巾 拓磨・西井啓二・榊田和子：辜丸附属小体について。泌尿紀要 9：443~455, 1963
- 16) Rose MB and Pambakian H: Bilateral torsion of the appendix testis. J Urol 110: 408~409, 1973
- 17) Rolnick D, Kawanoue S, Szanto P and Bush IM: Anatomical incidence of testicular appendages. J Urol 100: 755~756, 1968
- 18) 青山龍生・本間昭雄・三宅正文・阿部厚三：辜丸附属小体捻転症について：自験8例と文献的考察。西日泌尿 43：673~680, 1981
- 19) Ovist O: Swelling of the scrotum in infants and children, and nonspecific epididymitis. Acta Chir Scand 110: 417~421, 1955
- 20) Kaplan GW and King LR: Acute scrotal swelling in children. J Urol 104: 219~223, 1970
- 21) Hemalatha V, Rickwood AMK: The diagnosis and management of acute scrotal conditions in boys. Brit J Urol 53: 455~459, 1981
- 22) Seidel RF and Yeaw RC: Torsion of the appendix testis and appendix epididymis: A report of eight cases. J Urol 63: 714~717, 1950
- 23) Hamilton GR, DeKovessey CA and Cetz R J: Torsion of the appendix epididymis and appendix testis: Three case reports. J Urol 69: 436~438, 1953
- 24) McFadden GDF and Belf MCh: Torsion of the appendix of the testis. Lancet 1: 320~322, 1939
- 25) Foshee CH: Torsion of the appendix testis: Report of two cases. JAMA 99: 289~292, 1932
- 26) Murnaghan GF: The appendages of the testis and epididymis: A short review with case reports. Brit J Urol 3: 190~195, 1959
- 27) Redman JF and O'donnell PD: Simultaneous ipsilateral torsion of the appendices testis and epididymis. J Urol 117: 255, 1977
- 28) Oeconomopoulos CT and Chamberlain JW: Torsion of the appendix testis with observations as to its etiology: An analysis of 26 cases. Pediatrics 26: 611~615, 1960
- 29) 土屋文雄・日東寺浩・関 孝雄：辜丸垂捻転症について。臨床の日本 3：672~678, 1957
- 30) 増田六之助：流行性耳下腺炎に続発した辜丸炎並辜丸水泡體轉振症に就て。皮泌 1：464~467, 1933

- 31) 吉野 位: Appendix epididymidis ノ捻轉症ノ
1例. 日本外科寶函 15: 838~839, 1938
- 32) 大越正秋・辻 一郎: 睪丸附属體疾. 日泌尿会誌
41: 149, 1947
- 33) 三浦俊夫・中西淳朗: 睪上体垂捻轉症の1例. 泌
尿紀要 7: 608~614, 1961
- 34) Khan TA: Torsion of Hydatid of Morgagni.
Brit J Urol 37: 437~439, 1965
- 35) 加藤弘彰・堀米 哲: 副睪丸垂捻轉症の2例. 臨
泌 32: 81~84, 1978
- 36) Pedersen JF, Holm HH and Hold T: Tor-
sion of the testis diagnosed by ultrasound.
J Urol 113: 66~68, 1975
- 37) Levy BJ: The diagnosis of torsion of the
testicle using the doppler ultrasonic stetho-
scope. J Urol 113: 63~65, 1975
- 38) 公文裕己・陶山文三・朝日俊彦・松村陽右・大森
弘之: Testicular scanning による陰囊内疾患の
診断. 西日泌 44: 203~211, 1982
- 39) Hahn LC, Nadel NS, Gitter MH and Ver-
non AR: Testicular scanning: A new moda-
lity for the preoperative diagnosis of testi-
cular torsion. J Urol 113: 60~62, 1975
- 40) 市 拓磨・古川元明・長谷川末三・新井京子・西
井啓二: 睪丸垂捻轉の1例. 泌尿紀要 8: 415~
418, 1962
- 41) 石川 悟・石塚源造・小泉雄一郎: 興味ある副睪
丸垂捻轉症の2例. 日泌尿会誌 72: 501, 1981
- 42) 牧野昌彦・小林 取・寛 英雄・津村芳雄: 副睪
丸垂と睪丸垂が絞扼した症例. 日泌尿会誌 63:
991~992, 1972
- 43) 千葉 裕・加藤弘彰: 睪丸附属小体疾患の4例.
日泌尿会誌 73: 1360, 1982
- 44) Williamson RCN: Torsion of the testis and
allied condition. Brit J Surg 63: 465~476,
1976
- 45) 石川 悟・桜井淳一・矢崎恒忠・高橋茂喜・小川
由英・西浦 弘・加納勝利・北川龍一: 睪丸垂捻
轉症の1例. 日泌尿会誌 72: 113, 1981
- 46) Arcadi JA: Torsion of the appendix epi-
dymis: An unusual urological entity. J Urol
89: 467~469, 1963
- 47) Lambert J and Smith RE: Torsion of the
testicle and of the hydatid of Morgagni.
Brit J Surg 25: 553~560, 1937
- 48) Holland JM, Graham JB and Ignatoff JM:
Conservative management of twisted testi-
cular appendages. J Urol 125: 213~214,
1981
- 49) Koff SA and Ridder PD: Conservative
managment of intrascrotal appendiceal torsion.
Urology 8: 482~483, 1976
- 50) 工藤慎吉・清崎 寛・深水大民: 睪丸垂捻轉症の
2例. 日泌尿会誌 73: 965, 1982

(1983年7月6日迅速掲載受付)