

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

東京慈恵会医科大学泌尿器科学教室（主任：町田豊平教授）

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TRANSVERSE ECTOPIA OF THE LEFT TESTIS AND
TUMOR OF THE RIGHT TESTIS WITH IMMATURE
UTERUS: REPORT OF A CASESigeyuki KOTERA, Yukihiko OHISHI, Akira KIDO,
Takejiro OKAZAKI, Munetoshi YANAGISAWA, Masashige YOSHIDA,
Tetsuo OHNISHI and Toyohei MACHIDA*From the Department of Urology, The Jikei University School of Medicine
(Director: Prof. T. Machida)*

A case of transverse ectopia of the left testis and the right testicular tumor with the immature uterus is reported.

A patient, 37-year-old married man, was admitted to our hospital with swelling of the right scrotum. The left scrotum was empty.

Exploration of the right inguinal canal disclosed abnormal gonadal system. There were double testicles in the right scrotum with hernia uteri inguinalis.

The left testis showed transverse ectopia, and the histopathological finding of the right testis was seminoma.

In our review of Japanese literature, we have been able to discover only 56 reported cases of this particular type of transverse ectopia. Thirty-two cases (57%) out of 56 had associated hernia uteri inguinalis. A discussion was made chiefly on age, side, complains, and differential diagnosis.

緒 言

睾丸先天異常は、数的異常、形成不全、位置的異常などに分類されるが、この中で交叉性睾丸転位は特異な睾丸位置異常である。われわれは最近、左交叉性睾丸転位に右睾丸腫瘍と女性性器の残遺が hernia uteri inguinalis として認められた1例を経験したので報告する。また過去の交叉性睾丸転位例を文献的に集計し、若干の臨床統計的考察を加えた。

症 例

患者：篠田某 (No. 07-4954-4) 37歳，男子。

初診：1978年11月30日。

主訴：右陰囊内容腫大。

現病歴：1978年11月中旬より急激に右陰囊が腫大し、近医受診した。陰囊穿刺にて50mlの血性液を吸引したが、腫張に変化がないため当科を紹介された。また左陰囊内容は生下時より触知しないとのことであった。

既往歴：1975年腰椎外傷を受けるも後遺症なし。

家族歴：特記すべきことはない。

既婚：女兒（3歳）1人。

現症：胸腹部には視触診上、特に異常はない。右陰囊は超鷲卵大に腫脹し、睾丸と副睾丸は区別がつか

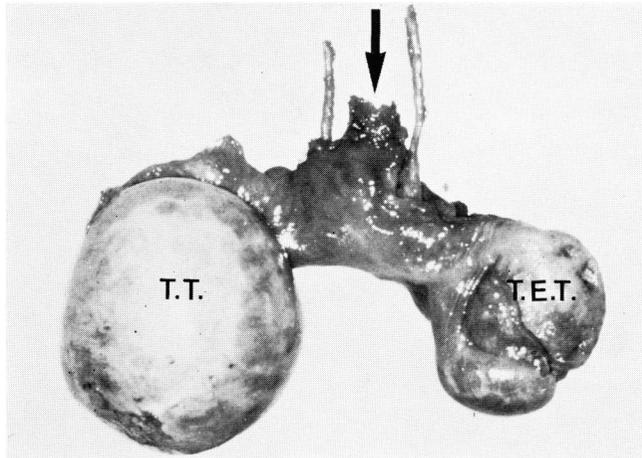


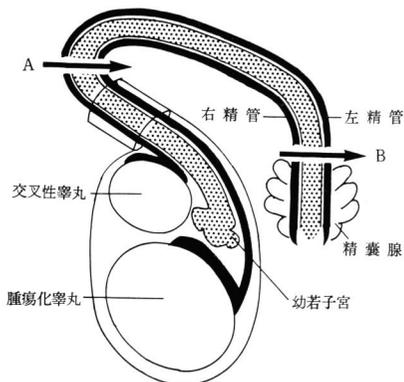
Fig. 1. 摘出標本 (T.T. は右腫瘍化睾丸, T.E.T. は左交叉性睾丸, 矢印は幼若子宮を示し, 両側精管が癒合していた.)

ず, 圧痛, 透光性はなく, 睾丸腫瘍の頭部に一部軟いところがある以外は硬く触れた。左陰嚢部, 左鼠径部には, 睾丸, 精索は触知せず, 外性器の発育は特に異常は認められなかった。

検査成績: 尿所見; 淡黄色清明, 蛋白(-), 糖(-), pH 6, 比重1.018. 沈渣, 赤血球 10~12/1 視野, 白血球 0~1/1 視野. 血液一般; RBC $501 \times 10^4/\text{mm}^3$, WBC $8,200/\text{mm}^3$ Ht 41%, Hb 15.1 g/dl, plat. $16.6 \times 10^4/\text{mm}^3$, 出血時間; 2分30秒. 凝固時間; 8分. ヲ氏反応陰性.

生化学所見: BUN 17.8mg/dl, Cr (クレアチニン) 0.9 mg/dl, Cl 104 mEq/l, Na 142 mEq/l, K 3.9 mEq/l, GOT 12U, GPT 6U, Al-P 6.9U, LDH 155U, T.P. 7.4 g/dl, 赤沈 1時間値 18 mm, 2時間値 43 mm.

内分泌検査: 17-OHCS 4.2 mg/day, 17-KS 11.1



右 左
Fig. 2. 手術所見

mg/day, estrogen 38.9 mg/day, 血清 HCG 陰性, AFP 1.0 ng/ml (RIA 法), CEA 1.8 ng/ml, 染色体; 46XY.

尿道造影: 正常所見.

以上の所見から右睾丸腫瘍と左腹腔停留睾丸と診断した。

手術時所見: 1978年12月5日, 全麻下でまず右高位除睾丸術に着手した。右鼠径部に皮切を加え右鼠径管を

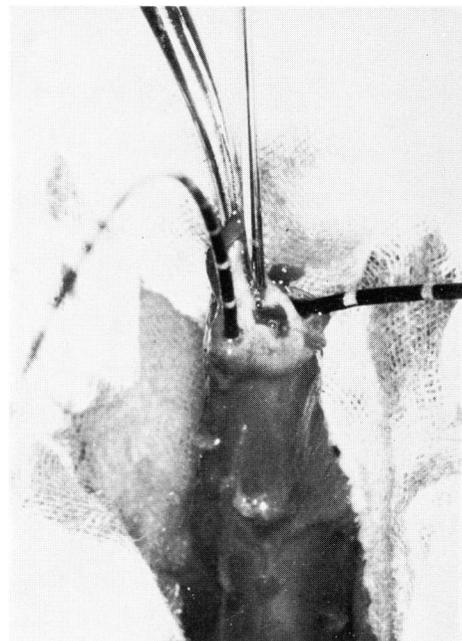


Fig. 3. 膀胱背側に位置するB部の切断部。(両側精管に尿管カテーテルが, 幼若子宮にゾンデが挿入されている.)

開き精索を露出した。精索は母指頭大と異常に太く、また硬靱であった。可及的に中樞側まで剝離をすすめ、精索を切断した。その断端部をみると、精管が2本ありさらにこの間に管腔構造が認められ、異常なことに気づいた。そこで、まず摘出物を確かめると全体に鞘膜に被れており、これを開くと腫瘍化した右辜丸と、他にもう1つのほぼ正常の辜丸が存在していた (Fig. 1)。腫瘍化辜丸とはほぼ正常辜丸の間に小鳩卵大の西洋梨状、弾性硬の組織が認められ、両側の副辜丸、精索と強く癒着していた。そこであらためて、両側精管の走行を観察するため、下腹部正中切開を追加し、精索切断部から精管をたどりながら、膀胱、尿道側まで剝離をすすめたところ、一本の精管は膀胱後腔で正中線をこえて、左側精囊腺に達していた。右精管は正常の走行であった。両側精管とともに精索内に存在した管腔組織は、直径約2 cmで棒状となり、両側精管と接しなが

ら走行し、前立腺部近くで盲端状に終わっていた Fig. 2は手術時のシェーマで、Aは高位除辜術を行なった位置、Bは管腔組織および両側精管を最終的に切断した位置である。Fig. 3は、Bでの断端部を膀胱側よりみたところを示しており、両側精管におのおの尿管カテーテルを、中央の管腔組織にゾンデが挿入されている。

摘出物の組織所見：右辜丸は大きさ7 cm×6 cm×5 cm、170 gで剖面は出血巣を伴いチョコレート嚢腫様であった。この病理組織はセミノームであった (Fig. 4)。左辜丸すなわち、交叉性辜丸はやや軟で大きさ4 cm×3 cm×3 cm、28 gで剖面は正常辜丸組織様で、この病理組織所見は、精細管の造精機能低下を示していた (Fig. 5)。

Fig. 2での矢印の部は、西洋梨状の弾性硬の組織で、剖面は管腔構造となり、両側精管間の管腔組織に

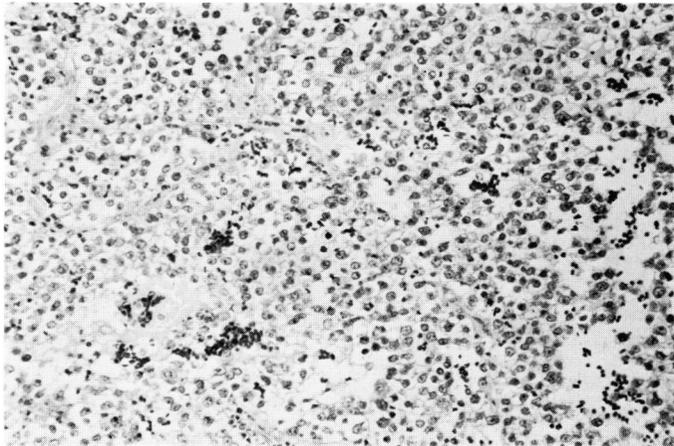


Fig. 4. 腫瘍化辜丸の組織像；Seminoma (×100)

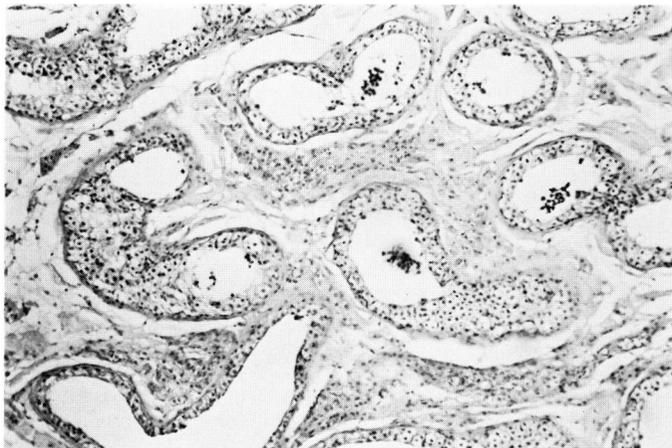


Fig. 5. 交叉性転位辜丸の組織像；精子形成の低下が認められる。(×50)

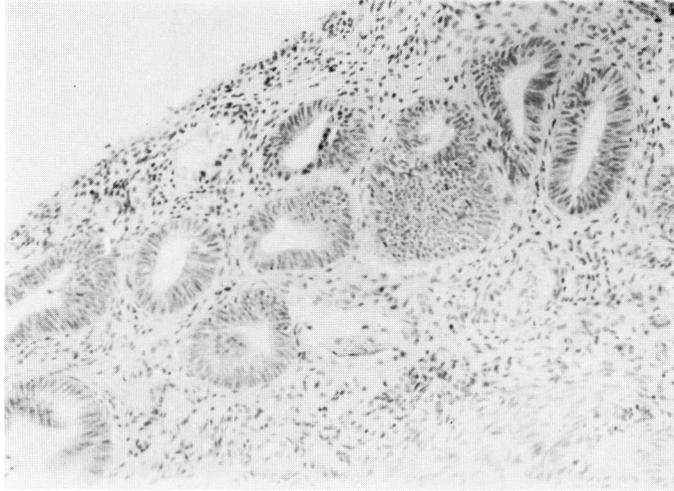


Fig. 6. 管腔構造の組織像；腺管構造，平滑筋層を有し幼若子宮である。(×100)

つづいていた。この病理組織は粘膜が腺管構造で，平滑筋筋層がみとめられ，幼若子宮組織であった (Fig. 6)。なお卵管および膣は確認されなかった。

以上より幼若子宮をともなった左交叉性辜丸転位と右辜丸腫瘍と診断した。

術後経過：セミノームに対する治療として術後，総線量 2500 rad を，右腸骨動脈，大動脈周囲リンパ節に放射線治療を行ない，術後2年現在，腫瘍の再発所見なく，健康である。また身体所見も著明な変化は認められない。

考 察

交叉性辜丸転位は，辜丸変位，辜丸横変位，横断性辜丸転移，交叉性辜丸偏位などの病名で発表されていたが，福田ら¹⁾ (1961) の報告以来，交叉性辜丸転位と呼ばれるようになっていく。欧米では，transverse aberrant testicular maldescent²⁾，paradoxical descent of the testis，transverse ectopia of the testis³⁾，unilateral double testicles⁴⁾，crossed ectopia of the testisなどと記載されている。その正確な定義もむづかしく，“一側辜丸が正中線を越えて他側にいたり，反対側の鼠径輪を通して下降し，同側の陰嚢に2つの辜丸が存在する場合⁵⁾”とされている。しかし，辜丸が一側に2個発生し，反対側には辜丸発生がみられない場合⁶⁾や，また，交叉性辜丸が，反対側陰嚢内に下降せず，反対側の腹腔内や，鼠径管に停留した状態である場合がある^{7~11)}。したがって交叉性辜丸転位とは，発生側の陰嚢に下降すべき辜丸が何らかの原因によって，反対側に転位した状態で，しかも転位辜丸の精管が，正中線を交叉，横断した状態とするのが正確と思

われる。すなわち，降下異常，支配血管，転位位置にはとられず，精管が正中線を交叉しているか否かが問題である。

本症についての最初の報告は1845年 Lenhossék¹²⁾ の35歳の剖検例とされ，欧米においてもきわめて稀れな疾患である^{3,13)}。本邦では，岩崎¹⁵⁾ (1912) の報告が最初で，以後われわれが文献的に集計しえた症例は自験例を含め56例で，天野¹⁵⁾の集計報告以降を Table 1 に示した。

本邦報告例による発見年齢は最少6か月，最高67歳である。10歳未満で発見された例は19例 (34%) で，20歳代までに56例中46例 (82%) で発見されている。

患側は右側31例，左側25例，とやや右に多い。患側の表記は陰嚢内容が欠如する側，すなわち，辜丸が，本来存在すべき側を患側として表わすのが良いと考えられる。

交叉性辜丸転位例には，女性性器である，子宮や卵管，膣などの残遺組織がみとめられることが多い。本邦56例中32例 (57%) に女性性器の残遺が認められた。その他，ヘルニア，陰嚢水腫，尿道下裂などの合併症もみられている。特に合併症として辜丸腫瘍を伴ったものは自験例も含め本邦では7例にすぎない^{7,16~20)} (Table 2)。

年齢は25歳より44歳までに分布し，転位側は右3例，左4例。2症例では転位辜丸が腫瘍化したもので，古沢，自験例を含む2症例は正常位辜丸の腫瘍化であった。他の3例については発生側は記載不明であった。腫瘍組織は，混合腫瘍1例，セミノーマ6例で，このうち，女性性器組織を伴った症例は7例中5例であった。

Table 1. 本邦の交叉性睾丸転位例（天野¹⁵⁾以降の報告例）

No.	報告者	年齢	患側	術前診断	合併症	睾丸転位部	治療	発表誌
48	小山	5	右	陰嚢内欠如	腔	腹腔内		日泌尿会誌, 68: 210, 1977.
49	岩佐	6	左	交叉性睾丸転位	子宮	鼠径部	固定術	日泌尿会誌, 68: 513, 1977.
50	鈴木	26	右	副睾丸炎		陰嚢内	固定術	金沢医大誌, 2: 82, 1977.
51	親松	27	左	交叉性睾丸転位	子宮, 卵管	陰嚢内	Transseptal orchiopexy	日泌尿会誌, 69: 526, 1978.
52	福士	2	左	両側停留睾丸	子宮	鼠径部	固定術	西日泌尿, 41: 733, 1979.
53	"	13	右	交叉性睾丸転位	子宮, 卵管	陰嚢内	固定術	西日泌尿, 41: 733, 1979.
54	勝見	22	左	交叉性睾丸転位		鼠径部	固定術	日泌尿会誌, 71: 302, 1980.
55	神保	11	右	交叉性睾丸転位		陰嚢内	Transseptal orchiopexy	臨泌, 34: 473, 1980.
56	自験例	37	左	睾丸腫瘍 + 腹部停留睾丸	子宮 Seminoma	陰嚢内	摘出	

Table 2. 睾丸腫瘍を伴った交叉性睾丸転位 7 症例

No	報告者	年度	臨床診断	年齢	転位患側	病理診断	女性性器
1	井上	1935	睾丸腫瘍	25	左	混合腫瘍	+
2	古沢	1960	睾丸腫瘍	31	重複睾丸(左)	Seminoma	-
3	大北	1971	睾丸腫瘍	30	右	Seminoma	+
4	浅野	1973	睾丸腫瘍	33	右	Seminoma	-
5	木下	1974	睾丸腫瘍	44	左	Seminoma	+
6	沢木	1976	左陰嚢腫瘍形成	32	右	Seminoma	+
7	自験例	1979	右睾丸腫瘍, 左腹部停留	37	左	Seminoma	+

本症の術前診断については、患側陰嚢内は無睾丸であるが、異常睾丸の存在が不明であるため、術前に診断することは困難である。術前診断しえた例は11例にすぎず、多くは鼠径ヘルニア、停留睾丸と診断され、手術中に始めて異常に気づくことが多い。

治療として本症で睾丸固定術が施行された例は56例中21例で、このうち8例は transseptal orchiopexy である。その他は術式の記載のないものが多いが、睾丸摘出と同時に子宮付属器摘出術が行なわれた例が多い。転位睾丸の組織変化、とくに造精機能に関して記載のあるのは56例中32例で、このうち精子形成低下が認められたのは18例、他の14例は正常もしくは年齢相当の睾丸組織像である。睾丸組織像の記載はないが、精液検査などで不妊症とみとめられた症例は2例である。したがって56例中20例(62%)は造精機能低下を示す症例と思われた。すでに子供を有する例は江里口²¹⁾、木下¹⁹⁾、および自験例の3例のみであった。転位睾丸の停留位置によっても造精機能の差がみられるのであろうが、正常位睾丸に比し、一般に造精機能は低下していると考えられる。

交叉性睾丸転位を臨床的に取り扱う場合に重要な点は、発生的に一般停留睾丸と区別して考えることである。睾丸の先天異常は Table 3 に示すごとく数数的異常、形成不全、位置的異常に分類されるが、交叉性睾丸転位は、女性性器を合併することが多く、睾丸異常下降群に含まれるものである。

一般に、陰嚢内に睾丸が存在しない場合、まず停留睾丸を考えるが、その他としては Table 3 に示した疾患を念頭におく必要がある。数の異常である無睾丸、多睾丸はきわめて稀れであり、非交叉性睾丸転位、いわゆる ectopic testis は報告された例が本邦ではわずか21例である²²⁾。いずれにしても臨床的には稀れな症例の術前診断は困難を伴う。

交叉性睾丸転位の病態の特徴の1つに前記したごとく hernia uteri inguinalis を伴う症例が多い(約半数)ことがあげられる。

hernia uteri inguinalis は、女性性器が鼠径ヘルニア嚢に嵌頓した場合をいい、すでに1892年 Boeckel²⁴⁾により症例報告されている。Motiloff (1931)²³⁾ は hernia uteri inguinalis 99症例を男女別に、A, B 2

Table 3. 睪丸の先天性異常と本邦報告例

A) 数の異常	
1) 睪丸欠損症	
i) 無睪丸症	(5例)
ii) 単睪丸症	(49例以上)
2) 多睪丸症	(8例)
3) 睪丸融合症	
B) 形態異常	
1) 形成不全, 萎縮	
C) 位置の異常	
1) 睪丸下降不全(停留睪丸)	
2) 睪丸異常下降	
i) 非交叉性睪丸転位	(21例)
ii) 交叉性睪丸転位	(56例)
hernia uteri inguinalis 合併例	(32例)
hernia uteri inguinalis を合併しない例	(24例)

つに分類し, さらに Nilson²⁴⁾ (1933) は, 男性にみられる hernia uteri inguinalis を3型に細分した. すなわち I型: ヘルニア嚢内に子宮と両側女性性器付属器および睪丸を容れているもの. II型: ヘルニア嚢内に子宮と片側の付属器および睪丸を入れているもの. III型: ヘルニア嚢内に重複子宮の一方の子宮角と付属器を入れているものである. 本邦では Hernia uteri inguinalis beim Manne の症例は32例の報告があるが, すべてが交叉性睪丸転位を伴っている. そしてこれはすべて Nilson の I型であり, III型の症例は本邦ではみられていない. これに対し, Jones and Scott²⁵⁾ (1958) は37例の hernia uteri inguinalis の症例中24例が Nilson の I型であって, 他の13例は, II, III型に属するものであったと報告している. こうした違いはすでに佐々木²⁶⁾, 沢木ら²⁰⁾が指摘しているように, 本邦では, 睪丸の先天位置異常に重点がおかれて, 半陰陽の立場から hernia uteri inguinalis の症例を発見し報告されることは少ない.

外性器が男性型であるにもかかわらず, 女性性器である子宮が残遺する理由については種々な説が述べられてきたが, いずれにしろ胎生時期の発生異常によることは予想される. Josso²⁷⁾ (1975) は, Müllerian inhibition factor (MIF) と名づけたペプチドが胎生期約8週で Müllerian duct に働き, 女性性器としての發育を阻止すると主張している. 男性への發育途上において, MIF の分泌作用が不十分な場合, ミュラー管は生後, 幼若子宮, 卵管, 膣となり hernia uteri inguinalis として残遺するにいたると思われる. また最近では, これらの Müller 管の残遺が認められる症例は persistent Müllerian duct syndrome として報告されている²⁸⁾. 今後, 胎生病理学と臨床病像と

を加味した合理的な半陰陽の分類ができるものと期待される.

以上のような諸説が論議されている現在, 交叉性睪丸転位をおこす成因についてはまだ定説はないが, 一応つぎのように説明されている. ① Müller 管から形成される Lig. latum が同側の睪丸下降を阻止し, 対側の睪丸下降に引張られたとする説²⁹⁾. ②睪丸導帯の萎縮によるとする説. ③睪丸下降の始まる前に左右の Wolff 管が尿, 生殖洞において癒合し精管下部は1本となり, 下降にあたって両側の睪丸は分離しないまま一側の陰嚢内に引き込まれるとする説³⁰⁾. などが考えられている. 高羽ら³¹⁾は詳細に構成組織を検討すれば, 交叉性睪丸転位症には, つねに種々の發育段階の Müller 管が存在すると述べているが Wolff 管由来と考えた方が妥当な症例もあり, その胎児発生段階で種々な形成がなされても不思議ではない.

結 語

1. 左交叉性睪丸転位症に右睪丸腫瘍(セミノーム)および子宮をともなう37歳の症例を報告した.

2. 本邦における交叉性睪丸転位は, 現在までに56例がみられており, 年齢は6カ月から67歳までであった. 合併症として女性性器をともなった症例は56例中32例(57%)であった. 睪丸腫瘍が合併した症例は自験例も含め7例である.

3. 片側陰嚢内に睪丸が存在しない場合の交叉性睪丸転位との鑑別診断, hernia uteri inguinalis, 半陰陽との関連および, 交叉性睪丸転位となる成因などについて考察した.

(本論文の要旨は第385回日本泌尿器科学会東京地方会で発表した.)

文 献

- 1) 福田勝次・板谷博之・堀口泰弘・寺西輝高・山本治: 男性子宮を伴った交叉性睪丸転位の1例. 日本外科宝函, **30**: 411, 1961.
- 2) Davis, J.E.: Transverse aberrant testicular maldescent. U.S. Armed Forces Med. J., **8**: 1046, 1957.
- 3) Dajani, A.M.: Transverse ectopia of the testis. Brit. J. Urol., **41**: 80, 1969.
- 4) Browne, A.F.: Unilateral double testicles. Canad. M.A.J., **82**: 84, 1960.
- 5) 石神襄次: 日本泌尿器科全書第6巻, p. 22, 金原出版, 東京, 1960.
- 6) Mukerjee S.: Transverse testicular ectopia with

- unilateral blood supply., **27**: 547, 1965.
- 7) 古沢太郎：重複睾丸例。日泌尿会誌, **51**: 213, 1960.
 - 8) 川野四郎：睾丸転位症の1例。日泌尿会誌, **54**: 782, 1963.
 - 9) 駒瀬元治・横川正之・大島博幸・斉藤 隆：睾丸の交差性変位をともなう男性半陰陽いわゆる Müllerian Intersex について。日泌尿会誌, **56**: 901, 1965.
 - 10) 小山右人・高木健太郎・斉藤隆司：停留睾丸多発の家系にみられた交叉性睾丸転位の1例。日泌尿会誌, **68**: 210, 1977.
 - 11) 福士泰夫・光川史郎・千葉隆一：女性性器の遺残を伴った交叉性睾丸転位の2例。西日泌尿, **41**: 733, 1979.
 - 12) Lenhossék: Ectopia testis transversa. Anat. anz, **1**: 376, 1886,
 - 13) 黒川一男・大田黒和生・高崎悦司・福田 覚・水谷栄之・足立卓三・島野栄一郎・晝間 哲：交叉性睾丸転位症例。日泌尿会誌, **55**: 294, 1964.
 - 14) 岩崎衛二：睾丸転位の一奇例。中外医事新報, **770**: 545, 1912.
 - 15) 天野正道・田中啓幹・大田修平・鈴木 学・大森弘之：Hernia Uteri Inguinalis の1例。西日泌尿, **39**: 536, 1977.
 - 16) 井上康平・辻本三郎：男性子宮を有する睾丸横変位の上に発生せる混合腫瘍の1例。日泌尿会誌, **24**: 736, 1935.
 - 17) 大北健逸・松元鉄二：男性半陰陽にともなう交叉性偏位睾丸のひとつに発生をみた Seminoma の1例。日泌尿会誌, **62**: 112, 1971.
 - 18) 浅野美智雄・徳江章彦：交叉性睾丸転位を伴う睾丸腫瘍の1例。日泌尿会誌, **64**: 358, 1973.
 - 19) 木下英親・松下一男：交叉性転位睾丸に発生したと考えられる腫瘍 (Seminoma) の1例。日泌尿会誌, **65**: 259, 1974.
 - 20) 沢木 勝・三崎俊光・松原藤継・北川正信・松田健史：睾丸腫瘍を合併した Hernia Uteri Inguinalis の1例。西日泌尿, **38**: 419, 1976.
 - 21) 江里口春志：睾丸横変位に就て。日泌尿会誌, **20**: 131, 1931.
 - 22) 岩月 晶・坂口 洋・奥田 暎：会陰部睾丸転位の1例。西日泌尿, **40**: 541, 1977.
 - 23) Motiloff: Zschr. f. Geburtsh. u. Gyn., **99**: 330, 1931.
 - 24) Nilson: Hernia uteri inguinalis beim Manne. Acta. chir. Scandinav., **83**: 231, 1939.
 - 25) Jones, H.W., Jr. and Scott, W.W.: Hermaphroditism, Genital Anomalies and Related Endocrine Disorders. Baltimore, The Williams & Wilkins Company, 1958.
 - 26) 佐々木進・西島高明・大山武司・早原信行・辻田正昭・新 武三：Hernia Uteri Inguinalis の1例, ならびに男性型男性半陰陽に対する2~3の考察。泌尿紀要, **21**: 295, 1975.
 - 27) Josso, N.: Mullerian inhibiting activity of calf fetal testes: Relationship to testosterone and protein synthesis, Biol. Reprod., **13**: 163, 1975.
 - 28) Sloan, W.R.: Familial persistent Mullerian duct syndrome. J. Urol., **115**: 459, 1976.
 - 29) 駒瀬元治・晝間 哲：睾丸の交叉性偏位を伴う男性假性半陰陽。日泌尿会誌, **48**: 660, 1957.
 - 30) 福井準之助：交叉性睾丸転位症の1例。臨泌, **25**: 61, 1971.
 - 31) 高羽 津・三瀬 徹・水谷修太郎：交叉性睾丸偏位症の1例。泌尿紀要, **11**: 402, 1965.

(1980年12月17日受付)