

## Hernia uteri inguinalis を合併し興味ある 経過を示した睾丸腫瘍の1例

東京慈恵会医科大学泌尿器科学教室

柳 沢 宗 利・町 田 豊 平・大 石 幸 彦  
木 戸 晃・高 坂 哲・徳 川 博 彦  
近 藤 直 弥・小 寺 重 行

### A CASE REPORT OF A RECURRENT TESTICULAR TUMOR (SEMINOMA) WITH HERNIA UTERI INGUINALIS

Munetoshi YANAGISAWA, Toyohei MACHIDA, Yukihiko OHISHI, Akira KIDO,  
Satoshi TAKASAKA, Shigeyuki KOTERA, Naoya KONDO and Hirohiko TOKUGAWA

*From the Department of Urology, The Jikei University School of Medicine, Tokyo, Japan*

*(Director: Prof. T. Machida)*

A twenty five-year-old man visited our hospital with chief complaints of lower abdominal tumor and dysuria. Three years ago, he had had an operation for his lower abdominal tumor, and post-operative diagnosis was dysgerminoma. Retrovesical tumor was suspected and several examinations were performed such as urethrography, excretory urography, pelvic angiography, computed tomography, needle biopsy of the lower abdominal tumor and seminal vesiculography. By the needle biopsy of the lower abdominal tumor, pathological diagnosis of "seminoma" was obtained but pathological diagnosis of 3 years ago was embryonal carcinoma with seminoma. The lower abdominal tumor was assumed to be recurrent testicular tumor (seminoma).

Radiation therapy was started to the lower abdominal portion and paraaortic portion, total dose being 4600 rads. The effect of the radiation therapy was observed in the tumor size and findings of urethrogram. One month after radiation therapy, lower abdominal tumor mass disappeared and urethrogram was within normal. A mullerian duct was found by seminal vesiculography and confirmed by the histological examination of postoperative specimens.

This is a case of a recurrent testicular tumor (seminoma) with hernia uteri inguinalis. The patient is under a pertinent follow-up observation.

### 緒 言

外観が男性型を示し、性腺として睾丸を有するにもかかわらず、内性器として種々の発育段階にある遺残Müller氏管を鼠径部に認める hernia uteri inguinalis を合併し、興味ある経過を示した睾丸腫瘍症例を経験したので、その経過を中心に文献的考察を加えて報告する。

症例 K.K. 25歳, 男 No. 02-1580-9

主訴: 排尿困難, 下腹部腫瘍

初診: 1979年1月20日

現病歴: 1976年3月21日, 左下腹部腫瘍に気づき某  
医で受診, 入院のうえ腹部腫瘍摘出術を受けた。術後  
の病理組織診断は 卵巣腫瘍 (dysgerminoma) であっ  
た。しかし1978年12月頃から下腹部正中に腫瘍を触知

するようになり徐々に腫大し、排尿困難が出現したために当科に受診した。

既往歴：生来右陰のう内容の欠如に気づくも放置していた。

現症：下腹部正中に  $10 \times 5$  cm で表面平滑、弾性硬の腫瘤を触知した。前立腺は直腸診ではほぼ正常であったが、前立腺の奥に小児頭大、表面平滑、移動性のない腫瘤を触知した。外性器は右陰のう内容を欠く以外異常を認めなかった。

#### 諸検査成績

<血液化学検査> RBC:  $523 \times 10^4/\text{mm}^3$ , WBC:  $4000/\text{mm}^3$ , Hb: 15.2 g/dl, Ht: 40%, TP: 8.2 g/dl, Alb: 65.0%, Al-p: 15.8 K-A 単位, Acid-p: 22 K-A 単位, prostatic acid-P: 0 K-A 単位, GOT: 13 mU/ml, GPT: 7 mU/ml, LDH: 250 uU/ml, BUN: 14.5 mg/dl, Cr: 0.9 mg/ml, Cl: 100 mEq/l, Na: 136 mEq/l, K: 3.8 mEq/l, AFP: 5.1 ng/ml, 尿中 HCG: 200 IU/day 以下,

<尿沈渣> RBC: 0~2, WBC: 0~1

<染色体検査> 46 XY

<レントゲン検査>

1) 胸部 X-P: 異常所見なし。

2) 腹部単純, 排泄性尿路造影('79.1.27): 腹部単純 X-P で小骨盤腔全体を占める均一な陰影を認め, 排泄性尿路造影20分像で上部尿路は正常であるが, 膀胱像の著明な上方への圧排変位を認めた (Fig. 1-A)。

3) 逆行性尿道造影('79.1.27): 膀胱底が骨盤骨部まで挙上され, 前立腺部尿道の著明な延長が認められた (Fig. 2-B)。

以上の結果から膀胱後腔腫瘍を疑い, 入院のうえ精査を行なうこととした。

#### 入院後経過

##### A 入院後諸検査

1) 骨盤動脈造影('79.2.28): 腫瘤に一致した異常血管像は認められなかった (Fig. 1-B)。

2) CT スキャン('79.3.1): 骨盤骨部まで挙上された膀胱底の直下に小児頭大で均一な陰影を認めた (Fig. 1-C)。

3) 腫瘤の生検('79.3.9): 前立腺生検針で得られた組織は非常に軟く, ゼラチン様で, 病理組織診断は Fig. 3-B のごとく胞体が明るく, 小さな核を有する細胞からなる seminoma であった。そこで1976年に某医で行なった手術時の摘出標本を再検討したところ, Fig. 3-A のごとく embryonal carcinoma + seminoma

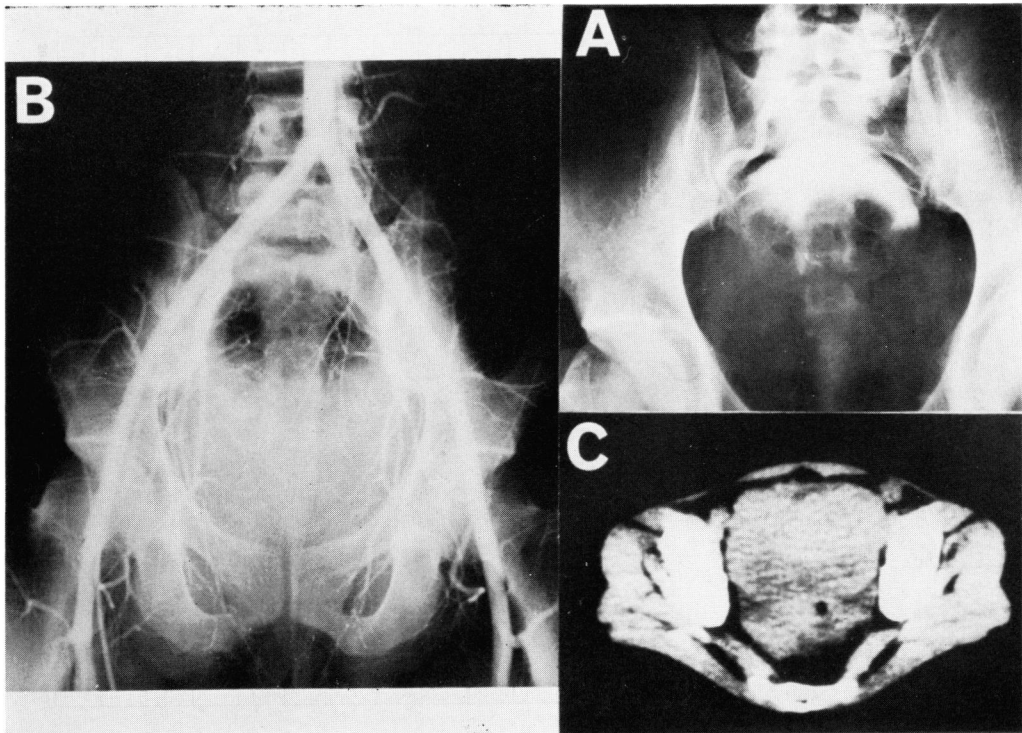


Fig. 1. A: excretory urography, B: pelvic angiography, C: CT scanning of the pelvic tumor.

の混合腫瘍と診断された。

4) 精嚢腺造影('79.3.9)：精管と思われる管腔構造を有する組織内に造影剤を注入し、得られた像が Fig. 4-A であった。遺残 Müller 氏管が造影されたものと考え、hernia uteri inguinalis を強く疑った。

以上の臨床経過、検査成績から、1976年当時の左下腹部腫瘍は、hernia uteri inguinalis に伴う交叉性睾丸転位の転位睾丸に発生した睾丸腫瘍 (embryonal carcinoma+seminoma) であり、3年を経過した今日、seminoma 成分が再発、下腹部腫瘍を形成したものと推測し、早速放射線治療を開始した。

#### B 治療

放射線治療を、1979年4月1日から全骨盤照射4600 rad/23 回、大動脈傍リンパ節に2520 rad/14 回施行し、治療の効果はきわめて著明であった。すなわち治療効果を、腹部腫瘍の消退とこれに伴う尿道像の変化で示すとつぎのごとくである。1976年の尿道 X-P (Fig. 2-A) は全く正常であるが、1979年当科初診時の尿道 X-P (Fig. 2-B) では、著明な膀胱底の挙上、前立腺部尿道の延長が認められた。放射線治療開

始1週目の尿道 X-P (Fig. 2-C) では、すでに前立腺部尿道の短縮傾向が認められており、この時点で、腹部腫瘍を触知することができなくなった。放射線治療終了1カ月目の尿道 X-P (Fig. 2-D) はほぼ正常であり、排尿状態はほぼ正常であった。

放射線治療終了後の1979年6月1日、精嚢腺造影を行なった際に発見された遺残 Müller 氏管を思わせる組織を確認するため、摘出術を施行した。

#### C 手術時の所見

精嚢腺造影時の切開創を陰茎根部から鼠径管に沿って延長し、精索を剝離すると、母指大の管腔構造を有する組織と、その後面に付着した精管が確認できた。おのおのを剝離すると、精管は正常な走行を保ち、管腔構造を有する組織は、膀胱後腔の精嚢腺部で盲端になっていることを確認した。なお放射線治療前に触知できた腫瘍は全く消失しており触知できなかった。

#### D 摘出物、組織所見

摘出物は Fig. 4-B のごとくで、内腔は明らかに粘膜で被われており、子宮を思わせるものであった。組織学的には Fig. 4-C のごとく平滑筋層と内膜を有す

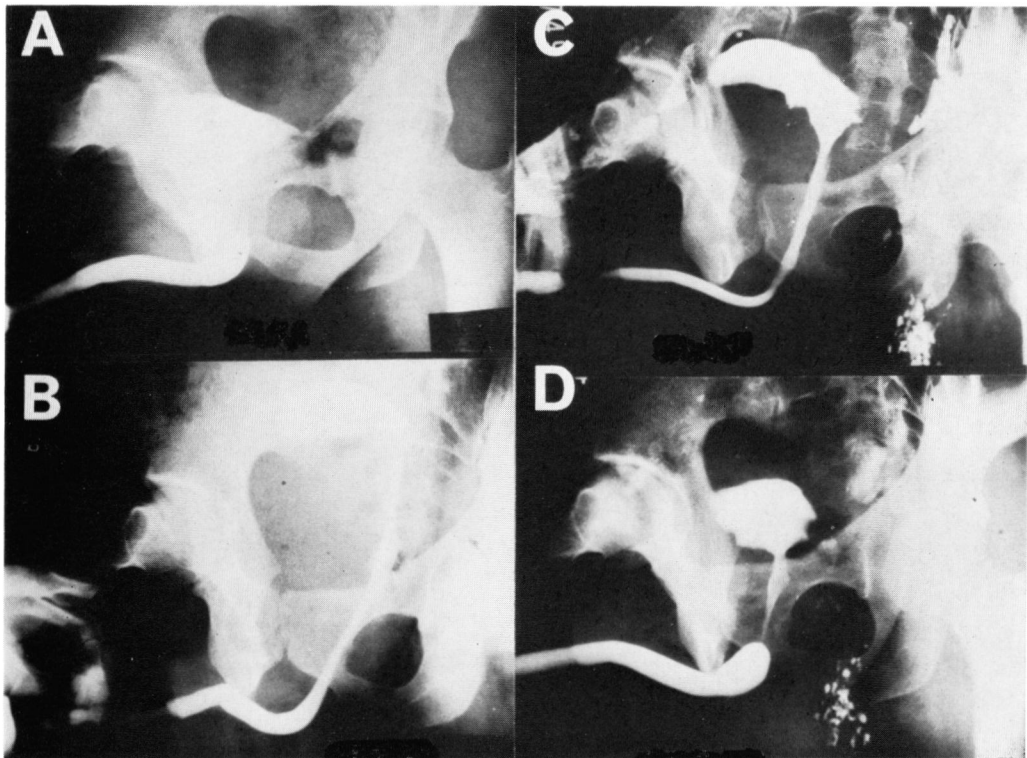


Fig. 2. The change of urethrogram by the radiation therapy. A: The urethrogram at 1976 (normal), B: Just before radiation therapy, C: One week after radiation therapy, D: One month after radiation therapy.

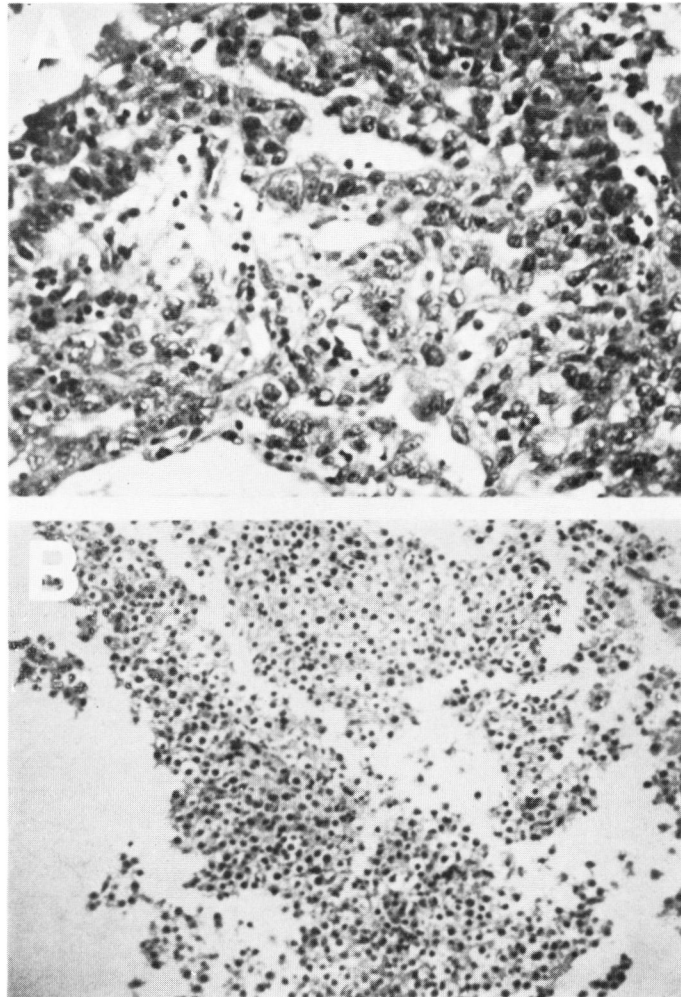


Fig. 3. A: Histological findings of the lower abdominal tumor mass by the operation at 1976.  
B: Histological findings of the lower abdominal tumor mass by the operation at 1979.

る幼若子宮であると診断された。さらに摘出物内に Fig. 4-D で示されているごとく卵管が確認された。

### 考 察

本邦における *hernia uteri inguinalis* の報告は1912年、岩崎<sup>2)</sup>らにはじまり、文献的にわれわれが調べたところでは自験例を加えて27例である。本症の名称の由来は、鼠径ヘルニアの手術に際して偶然発見されることが多いためであり、自験例については、精囊腺造影時に偶然発見されたもので、偶然性については全く同様である。

本症は睾丸の停滞および転位、特に交叉性転位の合併がつねに認められるとされているが、逆に交叉性睾丸転位の報告例から女性性器の合併頻度をみると、本

邦の交叉性睾丸転位例50例中、女性性器の合併はつきのごとくである。1) 子宮のみ：13/50 (28%)、2) 子宮および卵管：11/50 (22%)、3) 子宮および膣：1/50 (2%)、4) 子宮、卵管および膣：2/50 (4%)、5) 膣のみ：1/50 (2%)、6) 卵管のみ：1/50 (2%)、計 29/50 (58%) である<sup>3)</sup>。また黒川<sup>4)</sup>らは22例の交叉性睾丸転位例中14例64%に女性性器の合併が認められたと報告している。詳細に検討すればつねに種々の発育段階にある遺残 Müller 氏管が存在するという高羽<sup>5)</sup>の意見も考慮すべきである。

*hernia uteri inguinalis* に交叉性睾丸転位が合併する成因について、いくつかの仮説が唱えられている。正常 XY 個体では胎生期の睾丸から男性化を促す androgen 様物質と、Müllerian tube の発育を阻

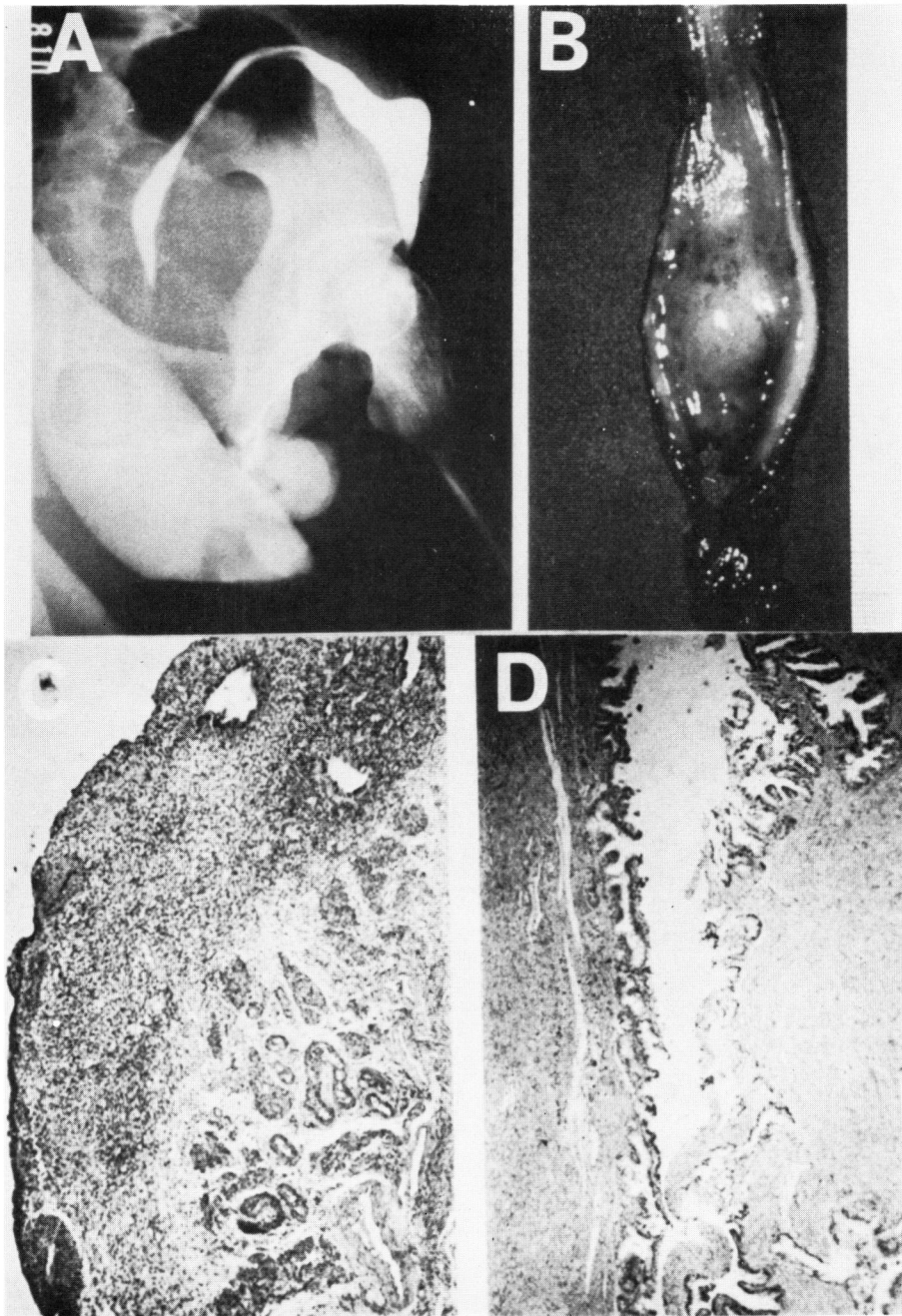


Fig. 4. A: The image of Mullerian duct was obtained accidentally by the examination of the seminalvesicography. B: The surgical specimen of the Mullerian duct. C: Histological findings of infantile uterus. D: Histological findings of ovarian duct.

Table 1. The cases of hernia uteri inguinalis with testicular tumor in Japan.

| No | 年度   | 報告者 | 年齢 | 主徴              | 患側 | 治療       | 女性性器 | 辜丸組織                     | 合併症              |
|----|------|-----|----|-----------------|----|----------|------|--------------------------|------------------|
| 1  | 1935 | 井上  | 25 | 右辜丸腫大<br>右鼠径部膨隆 | 右  | 摘除       | 子宮   | 混合腫瘍                     | 右鼠径ヘルニア          |
| 2  | 1971 | 大北  | 30 | 左陰嚢腫脹           | 左  | "        | "    | Seminoma                 | 左鼠径ヘルニア          |
| 3  | 1974 | 木下  | 44 | 右辜丸腫大           | 右  | 固定<br>摘除 | 幼若子宮 | "                        | (-)              |
| 4  | 1975 | 沢木  | 32 | 左陰嚢腫脹           | 左  | 摘除       | 子宮   | "                        | 両側鼠径ヘルニア<br>無精子症 |
| 5  | 1979 | 小寺  | 37 | 右陰嚢腫脹           | 右  | "        | "    | "                        | 右鼠径ヘルニア<br>無精子症  |
| 6  | 1979 | 自験例 | 25 | 左下腹部腫瘍          | 右  | "        | 幼若子宮 | Seminoma<br>Embryonal Ca | 右鼠径ヘルニア<br>無精子症  |

止する Müllerian inhibitor が分泌されているとする説が有力であり、胎生初期におけるこの Inhibitor の欠如ないし不足が Müllerian tube の發育を阻止できず、種々の發育段階にある Müllerian tube とこれらの支持組織が一侧辜丸の下降を阻止し、対側辜丸の下降に引っぱられるとされている<sup>5-7)</sup>。自験例は交叉性辜丸転位を確診することはできないが、臨床経過、手術所見等から交叉性辜丸転位を疑っている。

Nilson (1939)<sup>1)</sup> は hernia uteri inguinalis 34例を集計し、ヘルニア内容によってつぎの III 型に分類している。I) 子宮と両側卵管および辜丸を有するもの、II) 子宮と1側の卵管および辜丸を有するもの、III) 単角子宮ないし双角子宮の1角と1側の卵管を有するもの。天野(1977)<sup>9)</sup> らは、集計しえた本邦24例全例が I 型に属するとしており、自験例を Nilson の分類にあてはめてみると、本邦における唯一の II 型に属する症例である。

hernia uteri inguinalis を合併した 辜丸腫瘍例は、井上(1935)<sup>9)</sup>の報告以来、自験例を加えて6例にすぎない。辜丸腫瘍の組織型は seminoma: 4例 teratoma: 1例、自験例の embryonal carcinoma + seminoma: 1例である。平均年齢は32歳、辜丸腫瘍の好発年齢に一致している。腫瘍化した辜丸が、転位辜丸かどうかを、辜丸腫瘍を合併した交叉性辜丸転位例7例で検討してみると、転位辜丸の腫瘍化: 6/7 (86%) に対し、正常位辜丸の腫瘍化: 1/7 (14%)であった。この結果は停留辜丸に腫瘍が合併する頻度の高いことを示すものと関連があり、興味深い結果であった。

辜丸転位症例の辜丸組織像は、停留辜丸のそれと比べて、かなり保持されているとの報告や、そうでないとするものもあるが、本邦報告例に限ると、比較的保持されていることから極力辜丸固定術を行なう傾向に

あり、諸家はその固定法について報告している<sup>10-13)</sup>。しかし福士(1979)<sup>9)</sup>の報告では、交叉性辜丸転位50例中21例(42%)で除辜術が行なわれており、高頻度に除辜術が行なわれているのが現状である。女性性器に対する処置についての詳しい報告は見られず、女性性器を放置することによる悪性化の可能性、頻度を論じるには症例が少なすぎるが、原則として摘出すべきであるとされている<sup>14)</sup>。

自験例は、今日まで腫瘍の再発、tumor marker の異常を認めておらず、非 seminoma 成分の存在を疑わせる所見はないが、生検 (needle biopsy) で得られた組織診断であるだけに、今後さらに充分な経過観察が必要と考えている。

## ま と め

症例は25歳、男性、1976年、某医で腹部腫瘍の診断のもとに腫瘍摘出術を行ない、卵巣腫瘍 (dysgerminoma) の組織診断を受けている。1979年、下腹部腫瘍の再発を訴えて当科で受診、needle biopsy の結果 seminoma と診断され、放射線治療によって著明な腫瘍の消退をみた。1976年の手術時摘出標本を再検した結果、embryonal carcinoma + seminoma と診断された。下腹腫瘍の精査目的で行なった精嚢腺造影で、偶然 hernia uteri inguinalis が発見され、あらためて行なった遺残 Müller 氏管摘出術によって確認した。以上 hernia uteri inguinalis を合併し、興味ある経過を示した 辜丸腫瘍の 1例を経験したので報告した。

(本論文の要旨は第390回日本泌尿器科学会東京地方会で発表した。)

## 文 献

- 1) Nilson O: Hernia uteri inguinalis beim manne. Acta Chir Scand, **84**: 231~249, 1939.
- 2) 岩崎衛二：辜丸転位の1奇形. 中国医事新報, **763**: 545~548, 1912.
- 3) 福士泰夫・光川史郎：女性性器の遺残を伴った交叉性辜丸転位の2例. 西日泌尿, **41**: 733~738, 1979.
- 4) 黒川一男：交叉性辜丸転位症例. 日泌尿会誌, **55**: 294~301, 1964.
- 5) 高羽 津：交叉性辜丸偏位症の1例. 泌尿紀要, **11**: 402~408, 1965.
- 6) 駒瀬元治・昼間 哲：辜丸の交叉性偏位を伴う男性假性半陰陽. 日泌尿会誌, **48**: 660~670, 1957.
- 7) 佐々木 進：Hernia uteri inguinalis の1例ならびに男性半陰陽に対する2~3の考察. 泌尿紀要, **21**: 295~302, 1975.
- 8) 天野正道：Hernia uteri inguinalis の1例. 西日泌尿, **39**: 536~542, 1977.
- 9) 井上康平・辻本三郎：男性子宮を有する辜丸偏位の上に発生する混合腫瘍の1例. 日泌尿会誌, **24**: 736, 1935.
- 10) 福井準之助：交叉性辜丸転位症の1例. 臨泌, **25**: 329~332, 1971.
- 11) 古玉 宏：交叉性辜丸転位の2例. 臨床泌尿, **18**: 435~436, 1963.
- 12) 堀内 健：小児の右交叉性辜丸転位症の1治験例. 日本小児外科学会誌, **9**: 317~319, 1973.
- 13) 百瀬剛一・平岡 真：Transseptal orchiopexyの経験. 泌尿紀要, **7**: 562, 1961.
- 14) 落合京一郎：交叉性辜丸転位. 日本泌尿器科全書, **8II**: 538, 金原出版. 1961.

(1981年1月26日受付)