

31歳時と41歳時に精子採取可能であった クラインフェルター症候群の1例

増田 裕¹, 近藤 宣幸², 稲元 輝生³, 東 治人³
 勝岡 洋治³, 俵 史子⁴, 山下 正紀⁵
¹藍野病院泌尿器科, ²川西市民病院泌尿器科, ³大阪医科大学泌尿器科
⁴俵史子 IVF クリニック, ⁵山下レディースクリニック

A CASE REPORT OF SUCCESSFUL TESTICULAR SPERM EXTRACTION AT 31 YEARS AND 41 YEARS OF AGE IN A MAN WITH KLINEFELTER SYNDROME

Hiroshi MASUDA¹, Nobuyuki KONDOH², Teruo INAMOTO³, Haruhito AZUMA³,
 Yoji KATSUOKA³, Fumiko TAWARA⁴ and Masanori YAMASHITA⁵

¹The Department of Urology, Aino Hospital
²The Department of Urology, Kawanishi City Hospital
³The Department of Urology, Osaka Medical College
⁴Tawara Fumiko IVF Clinic, ⁵Yamshita Ladies Clinic

We report a case of Klinefelter syndrome with the chief complaint of male infertility. Normal pregnancy and delivery resulting from conventional testicular sperm extraction (TESE) and intracytoplasmic sperm injection (ICSI) was possible by a previous doctor when he was 31 years old. He was referred to our hospital for treatment of infertility when he was 41 years old. Abdominal ultrasonography demonstrated a low echoic region with a relatively uniform content in the left testis and a central low echoic small mass surrounded by a high echoic region in the right testis. In excised tissue of the left testis, only a single seminiferous tubule containing spermatozoa was found and sperm was successfully retrieved by microdissection TESE.

(Hinyokika Kiyō 57 : 649-651, 2011)

Key words : Klinefelter syndrome, Microdissection TESE, Male infertility

緒 言

クラインフェルター症候群の患者は多くの場合、無精子症となるが、microdissection TESEにより精巣内から精子採取可能な症例もある。しかし高齢になればなるほど精子採取率が低下すると報告されている¹⁾。今回、われわれは31歳時に他院で右の精巣から conventional TESE で精子採取され ICSI により拳児を得、その後41歳時に左の精巣から microdissection TESE でいずれも精子採取可能であった症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：41歳，男性
 主訴：拳児希望

現病歴：クラインフェルター症候群による無精子症のため、31歳時に他院で右の精巣から conventional TESE で精子採取され、ICSI により拳児（正常男児）を得た。その後凍結精子を使いきったため、TESE を

希望し来院した。

現症：身長 178 cm. 体重 66.6 kg. 中学生から射精，夢精。女性化乳房なし。髭，恥毛は薄い。外陰部

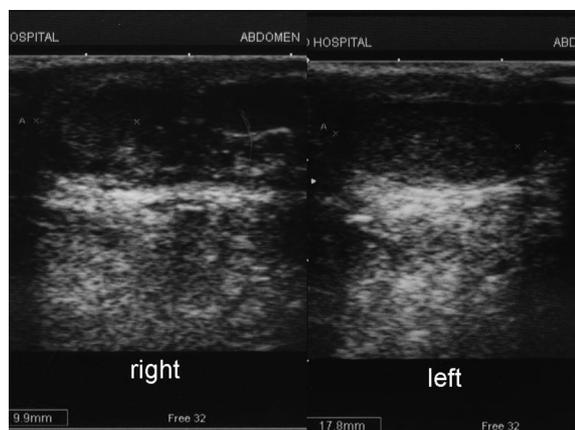


Fig. 1. Testicular ultrasonography demonstrated a low echoic region with a relatively uniform content in the left testis and a central low echoic small mass surrounded by a high echoic region in the right testis.

男性型。陰茎の発育良好。精巣は左右とも山口大学式（打ち抜き式）オーキドメーターで計測すると4 ml。

画像所見：超音波検査上、左精巣は比較的均一な低エコー像を呈していたが、右精巣は比較的均一な低エコー像を呈していた部分は左に比べて小さくその周囲が高エコー像を呈していた (Fig. 1)。

血液検査所見：LH 29.6 (2.2~8.4) mIU/ml, FSH 43.2 (1.80~12.00) mIU/ml, テストステロン 1.76 (2.01~7.50) ng/ml, 染色体は47,XXY。

精液所見：遠心でも精子確認出来ず。以上よりクラインフェルター症候群による無精子症の診断の下 microdissection TESE を行った。

前回の、TESE では、右精巣から精子を採取されており、術後の精巣機能を維持するためにも、以前 TESE を受けていない、左精巣は無傷のままでも残したかったため、microdissection TESE ではまず、右精巣を切開し、精巣の組織を観察したが、瘢痕組織がほとんどで、正常組織がほとんどなく、精子は採取不可能であった。左の精巣では、ほとんどの精細管は細く、比較的太い精細管は1つだけであり、その精細管に精子が存在した (Fig. 2)。また病理組織診断用に採集した精細管の組織診断は、左右とも精細管には Sertoli 細胞のみしか認めず、間質には Leyding 細胞の集塊を認める、Sertoli cell only syndrome の所見であった。採取した精子で ICSI をし、凍結胚を2回移植したが、子宮内膜の状態が悪く、妊娠は成立しなかった。



Fig. 2. Intraoperative view of testicular parenchyma in the attempted microdissection for testicular sperm extraction. Arrow indicates an enlarged tubule.

考 察

クラインフェルター症候群は男性不妊の原因となる性染色体異常である。女性化乳房、精巣の萎縮を伴い、ほとんどの場合無精子症となる。男子新生児の約1,000人に1人の割合で発生し比較的多い染色体異常の1つである。クラインフェルター症候群患者から、microdissection TESE を用いると精子を回収できる確率は約50%と報告されており、妊娠例も数多く報告されている²⁾。また35歳を境に、加齢により精子を回収できる確率が低下するとの報告もある¹⁾。クラインフェルター症候群患者で自然妊娠にて挙児を得その後、乏精子症で ICSI にて挙児を得、その2年後無精子症になり microdissection TESE で精子採取された症例³⁾も報告されており、このように加齢により明らかに精液所見が悪化した症例も報告されている。本症例でも31歳時に他院で右の精巣から conventional TESE で精子が採取され、ICSI により挙児を得ている。クラインフェルター症候群の患者から conventional TESE で精子を採取した報告もあるが⁴⁾、精子採取のためには、精巣組織を多量に採取する必要がある、本症例でも超音波検査上、conventional TESE が施行された右精巣にはほとんど精巣組織がなくなっていた。また41歳時にも microdissection TESE で精子採取可能であったが、精子の存在する精細管は左の精巣の1つの精細管だけであり、以前の TESE 時より精巣組織が悪化していると考えられた。クラインフェルター症候群は精巣が小さく、さらに精巣組織内での精細管とそれ以外のコントラストが明瞭であることから microdissection TESE 時、精子が存在する精細管が比較的同一しやすいとされている⁵⁾。今回の microdissection TESE 時、精子の存在する精細管は1つの精細管だけであったが、顕微鏡下に、この精細管がはっきり同一できた。本症例は、Table 1 のようにテストステロン値が10年前の conventional TESE 時より低下していた。これは加齢によるものと、前回の conventional TESE により右精巣から大部分の精巣組織を採取したためと考えられる。岡田らは⁶⁾クラインフェルター症候群患者の TESE 後のテストステロンについて報告しており、conventional TESE によるものだけでなく microdissection TESE でもテストステロンが低下し、術後のテストステロン補充の必要性を述べている。Microdissection TESE は、顕微鏡下で行うため組

Table 1. Clinical characteristics at 31 years and 41 years of age

| | 精巣容積 | LH | FSH | テストステロン | 病理組織 |
|-----|----------------|-------------|-------------|------------|-------------------|
| 41歳 | 右 4 ml, 左 4 ml | 6.0 mIU/ml | 43.2 mIU/ml | 1.76 ng/ml | Sertoli cell-only |
| 31歳 | 右 4 ml, 左 4 ml | 10.0 mIU/ml | 53.3 mIU/ml | 4.62 ng/ml | Sertoli cell-only |

織の採集量が少なくてもすみ, 石川らによると染色体 46,XY の非閉塞性無精子症で microdissection TESE 術後のテストステロンの低下は, ほとんど見られないが, クラインフェルター症候群患者の microdissection TESE 術後はテストステロンが約80%のレベルまで低下し, その後の回復が見られないと報告している⁷⁾. 今回の経験により, Aksglaede⁸⁾ らの報告のように, その mechanism は不明であるが, 加齢によりクラインフェルター症候群の精巣組織は悪化するが, 40歳を超えても精子採取可能である症例もあることがわかった.

結 語

今回われわれは31歳時に他院で右精巣から conventional TESE により回収された精子を用いた ICSI により拳児を得た後, 41歳時に左精巣から microdissection TESE によって運動精子の回収が可能であったクラインフェルター症候群の1例を経験した.

文 献

- 1) Okada H, Goda K, Yamamoto Y, et al.: Age as a limiting factor for successful sperm retrieval in patients with nonmosaic Klinefelter's syndrome. *Fertil Steril* **84**: 1662-1664, 2005
- 2) Koga M, Tsujimura A, Takeyama M, et al.: Clinical comparison of successful and failed microdissection testicular sperm extraction in patients with nonmosaic Klinefelter syndrome. *Urology* **70**: 341-345, 2007
- 3) Ichioka K, Utsunomiya N, Kohei N, et al.: Adult onset of declining spermatogenesis in a man with nonmosaic Klinefelter's syndrome. *Fertil Steril* **85**: 1511-1512, 2006
- 4) Kyono K, Uto H, Nakajo Y, et al.: Seven pregnancies and deliveries from non-mosaic Klinefelter syndrome patients using fresh and frozen testicular sperm. *J Assist Reprod Genet* **24**: 47-51, 2007
- 5) 辻村 晃, 松岡庸洋, 宮川 康, ほか: 非閉塞性無精子症に対する TESE の実際と成績. *Mod Physician* **27**: 1651-1654, 2007
- 6) Okada H, Shirakawa T, Ishikawa T, et al.: Serum testosterone levels in patients with nonmosaic Klinefelter syndrome after testicular sperm extraction for intracytoplasmic sperm injection. *Fertil Steril* **82**: 237-238, 2004
- 7) Ishikawa T, Yamaguchi K, Chiba K, et al.: Serum hormones in patients with nonobstructive azoospermia after microdissection testicular sperm extraction. *J Urol* **182**: 1495-1499, 2009
- 8) Aksglaede L, Wikström AM, Rajpert-De Meyts E, et al.: Natural history of seminiferous tubule degeneration in Klinefelter syndrome. *Hum Reprod Update* **19**: 39-48, 2005

(Received on January 19, 2011)
(Accepted on July 20, 2011)