

多精巢症の1例

山本 卓宜¹, 松田 洋平¹, 柴森 康介²
 松木 雅裕¹, 岩木 宏之³, 柳瀬 雅裕¹

¹砂川市立病院泌尿器科, ²函館五稜郭病院泌尿器科, ³砂川市立病院病理診断科

POLYORCHIDISM: A CASE REPORT AND REVIEW OF THE LITERATURE

Takanobu YAMAMOTO¹, Yohei MATSUDA¹, Kosuke SHIBAMORI²,
 Masahiro MATSUKI¹, Hiroyuki IWAKI³ and Masahiro YANASE¹

¹The Department of Urology, Sunagawa City Medical Center

²The Department of Urology, Hakodate Goryoukaku Hospital

³The Department of Pathology, Sunagawa City Medical Center

A 10-year-old boy presented with a painless left scrotal mass that had been present for 2 years. Ultrasound examination revealed 2 left testes measuring 2.4 ml and 1.0 ml with the same echogenicity. At surgery, there were 2 similarly sized testes connecting with other spermatic vascular, but the supernumerary testis had no connection with the vas deferens. Histological findings showed immature testicular tissue without malignancy. We report the 26th case of polyorchidism in Japan and discuss this condition.

(Hinyokika Kiyō 61 : 121-124, 2015)

Key words : Polyorchidism, Pediatric tumor, Testicular tumor

緒 言

多精巢症は同側に2個以上の精巣が組織学的に診断された先天奇形と定義された稀な疾患である。本邦で今までに25例¹⁾が報告されているが、悪性疾患が5.7~7%程度に報告^{2,3)}されており、ほとんどの症例で診断をかねた余剰精巣摘除が施行されている。今回われわれは余剰精巣摘除術を行った多精巢症の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者 : 10歳, 男児

主 訴 : 左陰嚢内腫瘍

家族歴 : 特記すべきことなし

既往歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 出生時体重 3,090 g の正常分娩で、発育に問題は認めなかった。母親は2011年頃(8歳)より左陰嚢内腫瘍に気づいていたが、無症状であったため医療機関の受診はしていなかった。2013年に精査を希望され前医受診し、同年2月当科紹介受診となった。身体所見では左陰嚢に2つの腫瘍を触知し、それぞれに精索らしきものは触れるが、精巣上体は不明であった。エコー上はどの精巣も均一なパターンを示し、右精巣は 3.8 ml, 左陰嚢内腫瘍は頭側が 2.4 ml, 尾側

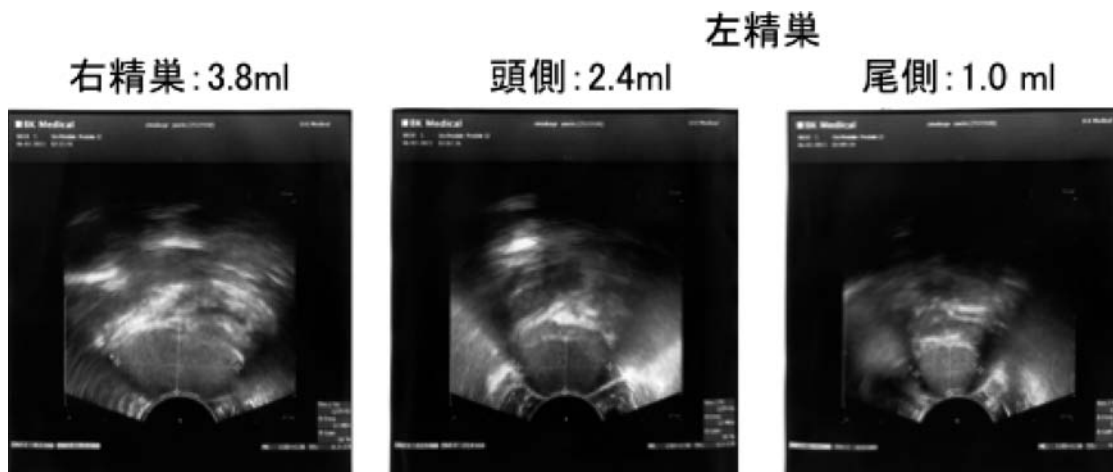


Fig. 1. Ultrasound examination of right and left testes.

は 1.0 ml であった (Fig. 1). 整容面での母親の希望もあり, 多精巣症の診断にて同年 3 月に左陰嚢内腫瘍生検および左余剰精巣摘除術施行した.

手術所見: 両精巣は共通の固有漿膜内にあり, 頭側精巣は 22×20 mm, 尾側精巣は 22×15 mm であった. 鞘状突起の開存は認めなかった. 血管束は頭側, 尾側精巣とも流入していたが, 尾側精巣に流入する血管は頭側に比べると細かった. また精管は尾側精巣を経由



Fig. 2. Operative findings showed 2 testes connecting with other spermatic vascular and 1 vas deferens.

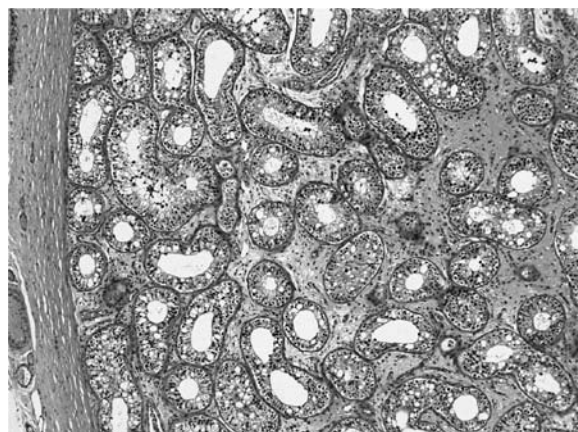


Fig. 3. Pathological findings of the supernumerary testis demonstrated an immature testicular tissue without malignancy (HE, $\times 20$).

するように走行していたが尾側精巣には流入しておらず, 頭側精巣にのみ流入していた (Fig. 2). なお精巣上体は頭側精巣にのみ確認された. 迅速病理では頭側精巣はやや未熟な精細管構造を認め, 尾側精巣は頭側に比べ成熟している精細管構造を認めた. 両精巣ともに悪性所見は認めなかったが, 尾側精巣は精管との交通がなく, 妊孕性はないと判断し摘除した.

病理組織所見: 14×10 mm の被膜を伴う精巣組織を認めるが, 精巣網は存在せず, 精細管内に精子形成も確認されなかった. 精細管構造は未熟ではあったが, セルトリ細胞, 精細胞は認められた. ライディッヒ細胞は認められなかった. また明らかな悪性所見も認められなかった (Fig. 3).

考 察

多精巣症は同側に 2 個以上の精巣が存在することが組織学的に診断された先天奇形と定義されている. 余剰精巣の発生機序としては, ①生殖隆起の分割過程での異常, ②生殖隆起の重複, ③中腎の部分的な退化の 3 つの説が考えられている⁴⁾.

自検例を含めて本邦には 26 例の多精巣症が報告されている (Table 1). 診断時の年齢の中央値は 14 歳 (2 ~ 49 歳) と幅広い. 無痛性陰嚢腫瘍を発見契機とする症例が多いが, 停留精巣, 鼠径ヘルニア, 尿道開口異常などの他疾患の治療時に発見されることもある.

多精巣症の治療戦略は確立されていないが, 本邦の検討では 22 例 (84.6%) が精巣摘除および余剰精巣摘除術が施行されている. Giyanani ら²⁾は余剰精巣の悪性化が正常精巣よりも高頻度におこることを報告しており, さらに Bergholz ら³⁾は存在部位が明らかであった悪性腫瘍 (7/8 例) はすべて陰嚢外に存在していることを報告している. 本邦における過去の報告^{1,5)}でも, 陰嚢外に認める余剰精巣は摘除すべきとの報告もあり, 陰嚢外に存在する余剰精巣の摘除は一定の見解が得られていると思われる.

一方で陰嚢内に存在する余剰精巣に対する治療は一定の見解が得られていない. Singer ら⁶⁾は陰嚢内腫瘍でも, ①生検で悪性・異型性を認める, ②解剖学的に精路を認めても造精能を欠く, ③超音波検査で悪性所見を認める, ④患者に余剰精巣摘除の希望がある, ⑤定期的な経過観察が望めない, 場合は摘出を推奨している. 本症例では迅速病理にて余剰精巣に悪性所見を認めず, 術中所見にて余剰精巣には精管が流入していないことを確認して摘除となった. しかし, 術前検査では正常精巣と余剰精巣の大きさはあまり変わらず, どちらが余剰精巣であるかの判断は困難であった. 豊田らの分類⁷⁾では精巣・精管・精巣上体の関係から下記の 6 型に分けられており (Fig. 4), 余剰精巣と精管

Table 1. Reported 26 cases of polyorchidism in Japan

No	報告者	年齢	主訴	患側	分類	治療
1	奈良ら (1924)	37	陰嚢内腫瘍	左	II	余剰精巣摘除
2	奈良ら (1924)	22	陰嚢内無痛性腫瘍	右	I	余剰精巣摘除
3	松岡ら (1941)	9	排尿痛, 精巣腫脹および疼痛	左	不詳	余剰精巣摘除
4	梅津ら (1971)	不詳	陰嚢内精巣触知不能	左	III	余剰精巣摘除および精巣固定
5	笥ら (1971)	28	精巣腫瘍	右	V	精巣生検, 精巣固定
6	豊田ら (1974)	24	側腹部痛, 腰痛	左	V	精巣生検
7	安井ら (1974)	12	尿道開口異常	左	V	余剰精巣摘除および精巣生検
8	藤岡ら (1978)	21	鼠径部腫瘍	右	VI	精巣摘除
9	三橋ら (1980)	14	陰嚢間欠的疼痛	左	不詳	余剰精巣摘除および精巣生検・固定
10	森山ら (1981)	32	排尿時痛, 鼠径部痛	右	VI	余剰精巣摘除および精巣・精巣上体生検
11	安部ら (1982)	49	無痛性精巣腫大	左	V	精巣摘除
12	谷口ら (1988)	3	尿道開口異常	右	V	余剰精巣摘除および精巣生検・固定
13	渡辺ら (1989)	17	陰嚢内腫瘍	左	IV	余剰精巣摘除および精巣生検
14	吉田ら (1989)	3	尿道下裂	右	V	不詳
15	黒田ら (1990)	20	陰嚢内無痛性腫瘍	左	V	精巣生検および精巣固定
16	宇野ら (1990)	34	陰嚢内有痛性腫瘍	左	IV	余剰精巣摘除および精巣生検
17	李ら (1992)	4	鼠径膨隆	左	II	余剰精巣摘除
18	鞍作ら (1996)	11	陰嚢内腫瘍	左	V	余剰精巣摘除
19	丹司ら (1998)	2	陰嚢内精巣触知不能	左	不詳	精巣摘除
20	梅田ら (1998)	26	鼠径部腫瘍	両側	不詳	精巣摘除
21	池江ら (1999)	3	鼠径部腫瘍	左	IV	余剰精巣摘除
22	塩野ら (2002)	3	陰嚢内精巣触知不能	左	V	精巣生検および精巣固定
23	吉田ら (2005)	2	陰嚢内精巣触知不能	左	II	余剰精巣摘除
24	吉村ら (2006)	6	鼠径ヘルニア	左	V	余剰精巣摘除
25	水流ら (2010)	28	陰嚢内無痛性腫瘍	左	IV	余剰精巣摘除
26	自験例	10	陰嚢内無痛性腫瘍	左	IV	余剰精巣摘除

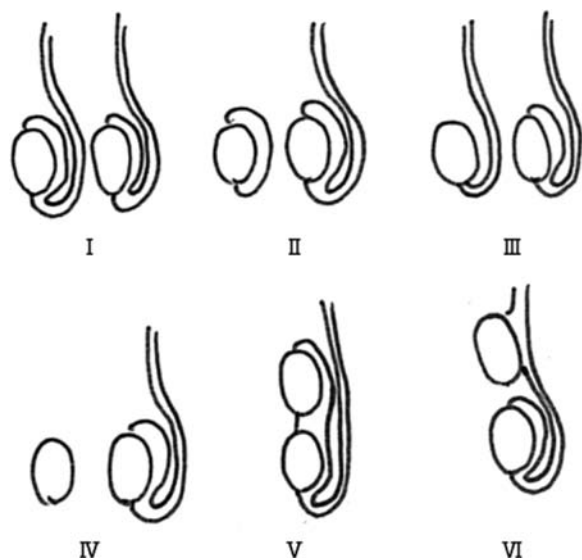


Fig. 4. The schema of Dr Toyoda's polyorchidism classification.

の交通がない症例は本邦では8例(30.8%)確認でき, 精巣・精管・精巣上体がともに確認できた症例は1例(3.8%)であった。また Bergholz らの報告³⁾では余剰精巣と精管の交通がない症例は18%と報告されている。

以上より, 術前検査にてどちらが余剰精巣であるか判断が困難で, さらに術中所見においても判断し兼ねる症例が少なからず存在する。過去の報告では陰嚢内に存在する余剰精巣に悪性所見を認めたという報告はない。Khedis M ら⁸⁾は画像検査にて確認できる陰嚢内に存在する多精巣症については外科的介入(鼠径ヘルニアや精巣固定術)が必要なければ, 保存的に経過をみることを提案している。また男児の2次性徴は精巣容量の増大より開始するとされ, 精巣容量が4mlを超えた時期とほぼ一致するとされている。精巣容量が4mlとなる年齢は 10.8 ± 1.3 歳と報告⁹⁾されており, 2次性徴後であれば, 造精能の確認もできるため余剰精巣が陰嚢内に存在を確認できた本症例では正常精巣の発育を待って, 摘除の有無を検討してもよかったかもしれない。

結 語

本邦26例目の多精巣症を報告し, 文献的考察を加えた。

文 献

- 1) 水流輝彦, 影山 進, 成田充弘, ほか: 多精巣症

- の1例. 日泌尿会誌 **101** : 738-741, 2010
- 2) Giyanani VL, MaCarthy J, Venable DD, et al. : Ultrasound of polyorchidism: case report and literature review. *J Urol* **138** : 863-864, 1987
 - 3) Bergholz R and Wenke K: Polyorchidism: a meta-analysis. *J Urol* **182** : 2422-2427, 2009
 - 4) Lawrentschuk N and MacGregor RJ: Polyorchidism: a case report and review of the literature. *ANZ J Surg* **74** : 1130-1132, 2004
 - 5) 鞍作克之, 伊藤哲也, 加藤禎一, ほか: 多精巣症の1例. 泌尿紀要 **42** : 389-392, 1996
 - 6) Singer BR, Donaldson JG and Jackson DS: Polyorchidism: functional classification and management strategy. *Urology* **39** : 384-388, 1992
 - 7) 豊田 泰, 丸山邦夫: 多精巣症について. 日泌尿会誌 **65** : 181-188, 1974
 - 8) Khedis M, Nohra J, Dierickx L, et al. : Polyorchidism: presentation of 2 cases, review of the literature and a new management strategy. *Urol Int* **80** : 98-101, 2008
 - 9) Matsuo N: Skeletal and sexual maturation in Japanese children. *Clin Pediatr Endocrinol* **2** : 1-4, 1993
- (Received on August 21, 2014)
(Accepted on November 11, 2014)