

停留精巣手術で見落とされていた腹腔内精巣から 発生した腹腔内精巣腫瘍の1例

勝永 泰章¹, 西澤 恒二¹, 八田原広大¹

吉田 徹¹, 千菊 敦士²

¹滋賀県立総合病院泌尿器科, ²せんぎく腎泌尿器科クリニック

A CASE OF INTRA-ABDOMINAL TESTICULAR CANCER OCCURRING FROM AN OVERLOOKED INTRA-ABDOMINAL TESTIS IN UNDESCENDED TESTICULAR SURGERY

Yasuaki KATSUNAGA¹, Koji NISHIZAWA¹, Kodai HATTAHARA¹,
Toru YOSHIDA¹ and Atsushi SENGIKU²

¹The Department of Urology, Shiga General Hospital

²Sengiku Urology Clinic

Here, we report an adult case of intra-abdominal testicular cancer after surgical treatment of an undescended testis in infancy. A 36-year-old male patient was accidentally diagnosed with a tumor in the pelvic cavity by ultrasonographic examination. He had hematuria and the human chorionic gonadotropin beta subunit level was slightly elevated. T2-weighted magnetic resonance imaging revealed a well-defined and highly intense mass. Since these findings suggested intra-abdominal testicular cancer, laparoscopic surgery was performed to remove the mass. Laparoscopy revealed an intra-abdominal tumor accompanied by a looping vas deferens entering the left inguinal canal. The distal part of the looping vas had already been removed from the external inguinal ring. The pathological findings revealed a pT1 seminoma. The patient has been recurrence-free for 12 months. The present case implies the importance of careful investigation and treatment for intra-abdominal testicular cancer, since intra-abdominal testis might have been overlooked at the time of surgery for undescended testis.

(Hinyokika Kiyō 69 : 85-89, 2023 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_69_3_85)

Key words : Intra-abdominal testicular cancer, Looping vas

緒 言

一般的に停留精巣は乳幼児期に手術され、成人期には当時の手術の詳細が不明であることが多い。一方、腹腔内停留精巣が疑われた場合は、鼠径管内や鼠径管外の停留精巣と比較して癌化リスクが高いため詳細な診断と治療が必要である¹⁾。今回われわれは、停留精巣の手術既往があるにもかかわらず画像検査で腹腔内精巣腫瘍を疑われたが、腹腔鏡により正確に状態を把握し適切に治療できた症例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 36歳, 男性

主 訴 : 肉眼的血尿

既往歴 : 左停留精巣術後

家族歴 : 特記事項なし

嗜好歴 : 喫煙歴なし, 飲酒なし

現病歴 : 20XX年5月, 一過性の肉眼的血尿を主訴に前医を受診。尿細胞診, 腎尿管膀胱部単純撮影では血尿の原因となりうる異常所見は認めなかった。偶

然, 腹部超音波検査にて左膀胱前腔に長径3cmの腫瘤を認めた。精査のため当科に紹介となった。

現 症 : 身長163cm, 体重68.6kg。左陰嚢内に精巣を触知せず左鼠径部に手術創を認めた。右陰嚢内に正常な右精巣を触知した。

初診時検査所見 : α -fetoprotein (AFP) 1.6 ng/ml (基準値 ≤ 7 ng/ml), human chorionic gonadotropin-total (hCG-total) 2.2 mIU/ml (基準値 ≤ 2.7 IU/ml), human chorionic gonadotropin- β (hCG- β) 0.2 ng/ml (基準値 ≤ 0.1 ng/ml), lactate dehydrogenase (LDH) 243 U/l (基準値 124~222 U/l)

画像所見 : MRI では脂肪抑制 T2 強調画像で長径4.7cmの境界明瞭で均一な高信号の腫瘤を左内鼠径輪の付近に認めた (Fig. 1)。CT では腫瘤以外に他の病変を認めなかった。幼少期に停留精巣の手術をされたが, 実際には腹腔内に停留精巣が残存し, それが悪性化した可能性があると考えた。腹腔内精巣腫瘍の疑いで, 20XX年5月腹腔鏡下精巣摘出術を施行した。

手術所見 : 全身麻酔下に骨盤高位とし, 臍上に12mmカメラポート, 6cm左側に5mmポート, 6cm



Fig. 1. Axial fat-suppressed T2-weighted magnetic resonance image demonstrated a well-circumscribed and homogeneous high intensity tumor near the left internal inguinal ring (arrow).

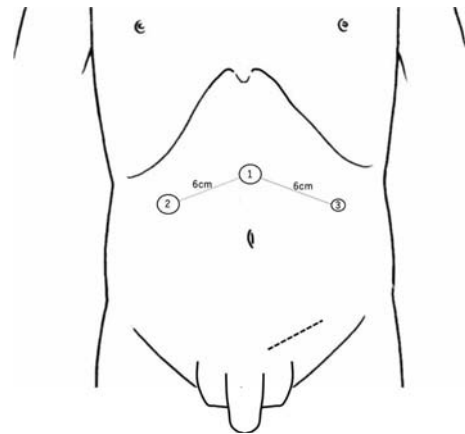


Fig. 2. Schema of ports and incision (dotted line).
①: 12 mm supraumbilical camera port;
②: 12 mm port; ③: 5 mm port.

右側に 12 mm ポートを配置した (Fig. 2). 腹腔内を観察すると左内鼠径輪から下垂した左精巣を認めた (Fig. 3A). 内鼠径輪は開大し精巣から連続する精巣上体が鼠径管に進入しており, 精巣上体の付着異常を伴



A



B



Fig. 3. A: laparoscopic view showing a testicular tumor near the left internal inguinal ring (arrow). B: Laparoscopic view and anatomical drawing showing the testis, epididymis, vas deferens, and inguinal canal. a, testis; b, epididymis; thick line, vas deferens; circle, left internal inguinal ring.

う所見であった。鼠径管から精囊側の精管の走行は腹腔内から観察することができた。S状結腸外側の腹膜を切開して性腺静脈を阻血した。精巣上体を内鼠径輪から鼠径管内に向けて剥離を進めたが、外鼠径輪付近から剥離困難となった。精巣上体および精管の走行から looping vas の状態であったと考えた (Fig. 3B)。精管、性腺静脈を切断して幼少期の手術創に沿って左鼠径を切開し、周囲との癒着を剥離して精巣を摘出した (Fig. 2)。術後のヘルニア予防のため、内腹斜筋外縁と鼠径靭帯を縫合閉鎖し、外腹斜筋腱膜を縫合して鼠径管を閉鎖した。

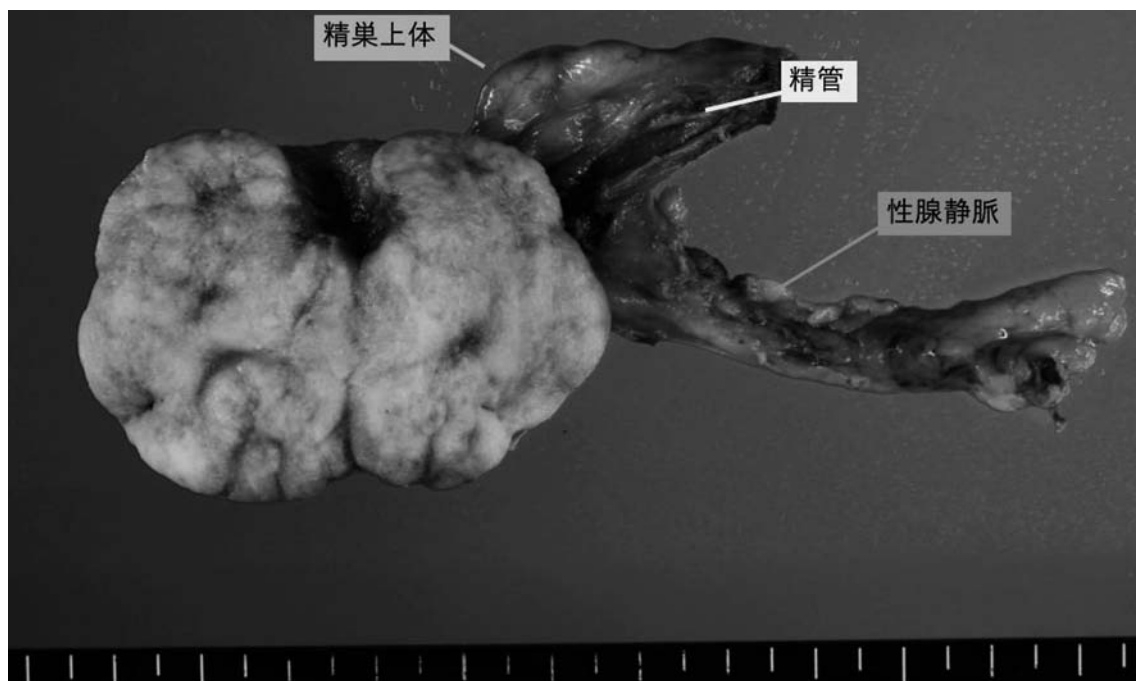
手術時間は4時間0分、出血量は少量であった。

病理組織学的所見: 肉眼的には、精巣に灰白色調の

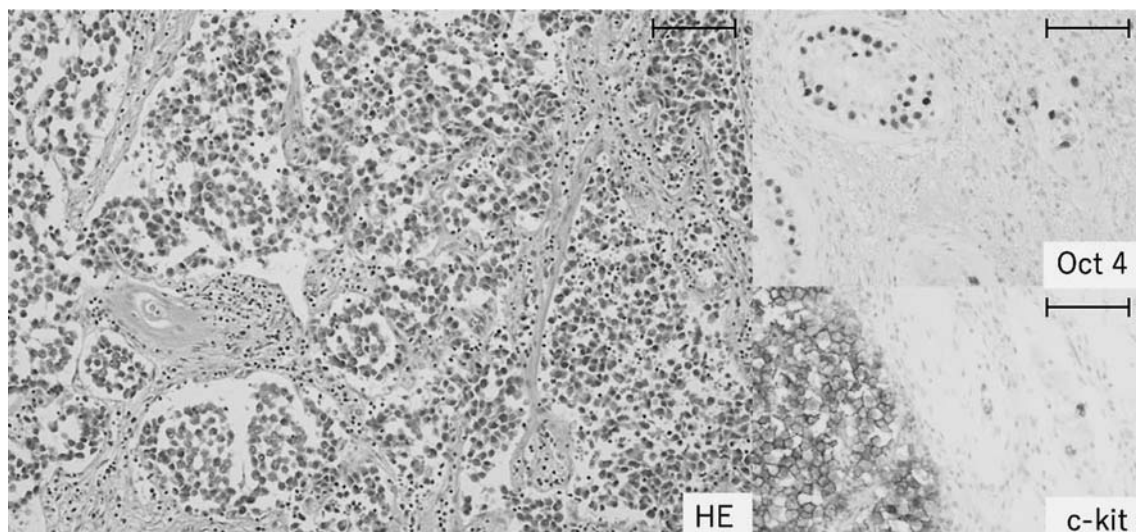
均一な3.5 cmの腫瘍を認め、そこから続く精巣上体は精巣に付着しておらず、精管は鼠径管内の癒痕組織につながりそこで反転していた (Fig. 4A)。HE染色では精巣内に限局する類円形で核小体明瞭な核を持つ腫瘍細胞とリンパ球の浸潤を認めた。精巣網浸潤、尿管侵襲は認めなかった。

免疫組織染色では Oct4 陽性、c-kit 陽性を示し、セミノーマ pT1 の診断であった (Fig. 4B)。術後に幼少期の停留精巣治療の詳細を照会したところ、「鼠径アプローチで嚢状の構造を摘出したが病理組織検査では精管成分のみであったため、無形成精巣と診断した」という記録を提供いただいた。

臨床経過: 術後の経過に問題なく、術後6日目に退



A



B

Fig. 4. A: Gross appearance of surgical specimen. B: Histopathological findings of testicular tumor (scale bar: 100 μ m).

院した。術後1カ月で、hCG- β は感度以下となり、術後12カ月時点で再発を認めていない。

考 察

停留精巣は精巣悪性腫瘍を発生しやすいことが知られており、正常精巣に比べて2.75~7.5倍の発生リスクと報告されている²⁾。温度、ホルモンなどの環境因子や遺伝子レベルの因子が影響していると考えられている¹⁾。そのため、停留精巣を的確に診断し治療することは重要である。

停留精巣では鼠径部に触知しない非触知精巣が停留精巣の20%を占める。非触知精巣には、精巣の状況によって腹腔内精巣、鼠径管内精巣、萎縮精巣/精巣無発生に大別される³⁾。また、停留精巣には精巣上部や精管の異常を伴うことが多く、停留精巣全体の36~88%に認めると報告されている⁴⁾。精巣上部の異常では精巣から精巣上部の尾部が遊離している状態である付着異常が最も多い。精管の異常では精巣より遠位で精管がループ状に反転する looping vas (Long loop vas と呼ばれる) が最も多いとされ、停留精巣の症例のうち20%で looping vas を認めたとする報告もある⁴⁻⁶⁾。looping vas は精巣固定時に精管として認識されず切断される例があり、停留精巣においては常に念頭におくべき形態異常である⁴⁾。本症例でも精巣上部の付着異常と looping vas を認め、幼少期の停留精巣治療時に looping vas を萎縮精巣や精巣無発生と認識して摘出し、精巣は腹腔内に残存していたものと推測された (Fig. 5)。このように萎縮精巣や精巣無発生が疑われる非触知精巣では、MRI などの画像診断や腹腔鏡を用いた詳細な診断と治療が重要と考えられた。

近年、非触知精巣に対して腹腔鏡による検査と治療の有用性を示す報告が見られる⁷⁾。しかし、成人の腹腔内精巣腫瘍に対し腹腔鏡で治療される症例は、比較

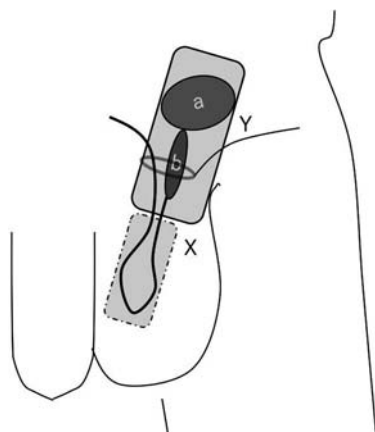


Fig. 5. Schematic drawing of the anatomical conditions. a: testis, b: epididymis, circle: left internal inguinal ring. X: looping vas assumed to be removed in infancy. Y: present specimen.

Table. Summary of 26 cases with intra-abdominal testicular tumor

年齢	32歳 (21-50)
症状	
腹痛	15例 (捻転4例, 破裂5例)
腹部腫瘍	8例
無症状	3例
腫瘍径	12 cm (4.4-25.0)
病理	
セミノーマ	21例
非セミノーマ	5例
病期分類	
I期	18例
II期	5例
III期	2例
不明	1例
生検	4例
外科治療	
開腹	23例 (うち3例は RPLND 施行)
腹腔鏡	3例

* RPLND: retroperitoneal lymph node dissection.

的少数にとどまっている。われわれが検索しえた2015年以降の腹腔内精巣腫瘍の報告26症例をまとめた (Table)⁸⁻³²⁾。診断時の年齢中央値は32歳で、腫瘍の増大に伴う捻転、破裂による疼痛や腹部腫瘍触知で見つかる症例が多く、そのため腫瘍径の中央値 12 cm と大きくなってから見つかる傾向があった。病理結果はセミノーマ21例、非セミノーマ5例で日本泌尿器科学会病期分類ではI期:18例、II期:5例、III期:2例、不明:1例であった。治療開始前に生検で診断されたのは4例であり、22例は腫瘍の摘出によって診断されていた。外科治療は腫瘍径が大きい開腹手術が23例と多く、自験例のように5 cm 以下と比較的腫瘍径の小さい段階で診断され腹腔鏡で切除した症例は3例 (12%) で比較的少数であった。

本症例のように、幼少期に停留精巣の手術歴のある患者は、治療の詳細が不明であることが少なからずあり、腹腔内精巣が適切に診断されず見落とされた可能性もある。腹腔内に腫瘍を認めた場合は、停留精巣の手術後でも腹腔内停留精巣の残存の可能性を念頭に置いた注意深い診察と、腹腔鏡手術による詳細な観察と治療を検討すべきと考えられた。

結 語

幼少期に停留精巣の手術歴のある成人の腹腔内精巣腫瘍に対して、腹腔鏡手術で的確に状況を把握し治療し得た症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Swerdlow AJ, Higgins CD and Pike MC: Risk of testicular cancer in cohort of boys with cryptorchidism. *BMJ* **314**: 1507-1511, 1997
- 2) 林 祐太郎, 生野 猛, 岩村喜信, ほか : 停留精巣診療ガイドライン. *日小泌会誌* **14**: 117-152, 2006
- 3) Tasian GE and Copp HL: Diagnostic performance of ultrasound in nonpalpable cryptorchidism: a systematic review and meta-analysis. *Pediatrics* **127**: 119-128, 2011
- 4) Thomas P and Day WG: Beware the looping vas deferens in orchidopexy. *Urology* **104**: 194-195, 2017
- 5) Miliaras D, Vlahakis ME, Anagnostopoulos D, et al.: Gross morphologic variations and histologic changes in cryptorchid testes. *Pediatr Surg Int* **12**: 158-162, 1997
- 6) Moschcowitz AV: The anatomy and treatment of undescended testis; with especial reference to the Bevan operation. *Ann Surg* **52**: 821-835, 1910
- 7) Kojima Y, Mizuno K, Kamisawa H, et al.: Laparoscopic management of nonpalpable testis, new treatment strategy. *J Endourol* **25**: 635-640, 2011
- 8) Jorge RM, Ramiro CN, David CS, et al.: Intra-abdominal seminoma testis in adult: case report. *Arq Bras Cir Dig* **28**: 296-297, 2015
- 9) Thirunavukkarasu S and Kenny R: Spontaneous rupture of intra-abdominal seminoma. *IOSR-JDMS* **14**: 33-35, 2015
- 10) Oliver JN, Char LT, Thian YL, et al.: A torted ruptured intra-abdominal testicular seminoma presenting as an acute abdomen. *Radiol Case* **9**: 21-28, 2015
- 11) Danie V, Philio Z, Tina M, et al.: Intra-abdominal seminoma found incidentally during trauma workup in a man with bilateral cryptorchidism. *Urol Ann* **7**: 534-536, 2015
- 12) Sajjad H: Torsion of a giant intra-abdominal testicular seminoma presenting as acute abdomen. *Indian J Surg* **77**: 64-65, 2015
- 13) Mishima T, Harada J and Kawa G: Intra-abdominal germ cell tumor in persistent müllerian duct syndrome. *Hinyokika Kyo* **62**: 439-443, 2016
- 14) Anand S, Navneet K and Gunjeet S: Mixed germ cell tumor in an infertile male having unilateral cryptorchidism. *J Clin Diagn Res* **10**: 17-18, 2016
- 15) Manisha M and Yerraguntla SS: Persistent müllerian duct syndrome of mixed anatomical variant (combined male and female type) with mixed germ cell tumor of left intra-abdominal testis. *Indian J Pathol Microbiol* **59**: 212-215, 2016
- 16) Syed A, Kiran S, Vishnu K, et al.: Seminoma of undescended testis with urinary bladder metastasis. *Urol Ann* **9**: 77-79, 2017
- 17) Elizabeth R, Gilda D, Eric G, et al.: Large intra-abdominal seminoma in a left undescended testicle complicated by torsion. *BMJ Case Rep* **28**: 22670, 2018
- 18) Deepak KD, Nikita W, Ravi SP, et al.: Spontaneous rupture of seminoma in undescended testis with hemoperitoneum. *BMJ Case Rep* **19**: 224898, 2018
- 19) Sardar RI, Shafiqur R, Shahalam, et al.: Intra-abdominal testicular tumor. *Arch Surg Clin Res* **2**: 025-028, 2018
- 20) Fatih S, Sertac C, Sanem GC, et al.: Bilateral intra-abdominal testicular tumor. *Int J Surg Case Rep* **49**: 102-105, 2018
- 21) Marius NN, Clarence MM, Frank LT, et al.: Ambiguous presentation of an intra-abdominal testicular seminoma in a 40-year-old man. *J Med Case Rep* **13**: 2, 2019
- 22) Ahmed KI and Aza M: Synchronous bilateral intra-abdominal seminoma presented as acute abdomen. *Clin Oncol* **4**: 1611, 2019
- 23) 栗林宗平, 北風宏明, 大草拓也, ほか : 腹腔内精巣にセミノーマを認めたアンドロゲン不応症候群の1例. *泌尿紀要* **65**: 181-184, 2019
- 24) Bingqing Y, Zilian C, Weiting K, et al.: Abdominal cocoon with bilateral cryptorchidism and seminoma in the right testis. *BMC Surg* **19**: 167, 2019
- 25) Daniel GW, Nirmish S and Aditya B: Massive intra-abdominal germ cell tumors. *Rev Urol* **21**: 136-140, 2019
- 26) Sardar RI, Maruf R, Shah AS, et al.: Ruptured intra-abdominal testicular seminoma presented with massive hemorrhage. *Chronic Oncol* **3**: 1007, 2020
- 27) Ahmed Ghobashy, Doaa H, Ahmed A, et al.: Acute abdomen caused by rupture of a torted intra-abdominal testicular mass. *Int J Surg Case Rep* **68**: 224-227, 2020
- 28) Ali AA, Adnan AQ, Nizae AS, et al.: Persistent müllerian duct syndrome with intra-abdominal seminoma. *Urol Case Rep* **33**: 101342, 2020
- 29) Gonda H, Saito T, Osawa T, et al.: Ruptured intra-abdominal testicular seminoma with hemorrhage shock, after inadequate surgical exploration for undescended testis. *Surg Case Rep* **7**: 65, 2021
- 30) Muhamat GA and Bungaran S: Intraabdominal mass in adult men with unilateral UDT revealed as seminoma. *Urol Case Rep* **39**: 101806, 2021
- 31) Purushottam P, Manish MP, Suman C, et al.: Intra-abdominal mass with empty scrotum in adult male. *Urol Case Rep* **34**: 101451, 2021
- 32) Savita A, Neha S, Arun KR, et al.: Complete androgen insensitivity syndrome with intra-abdominal seminoma in a phenotypic female. *J Cancer Res Ther* **17**: 272-275, 2021

(Received on June 17, 2022)
 (Accepted on October 31, 2022)