

不妊を契機に発見された多精巣症の1例

岩本 源太¹, 竹島 徹平², 黒田晋之介²
湯村 寧², 上村 博司¹

¹横浜市立大学附属市民総合医療センター泌尿器・腎移植科

²横浜市立大学附属市民総合医療センター生殖医療センター泌尿器科

A CASE OF POLYORCHIDISM ASSOCIATED WITH INFERTILITY

Genta IWAMOTO¹, Teppei TAKESHIMA², Shinnosuke KURODA²,
Yasushi YUMURA² and Hiroji UEMURA¹

¹The Department of Urology and Renal Transportation, Yokohama City University Medical Center

²The Department of Reproductive medical center, Yokohama City University Medical Center

A 30-year-old man present with infertility for 2 years. Magnetic resonance imaging (MRI) revealed two right testes in the scrotum and inguinal region, respectively. Semen analysis revealed cryptozoospermia. Polyorchidism was considered to have caused spermatogenic dysfunction and male infertility. We performed right high orchiectomy and simultaneous testicular sperm extraction on the same testis. To our knowledge, this is the first case of testicular sperm extraction performed for patients with polyorchidism.

(Hinyokika Kiyo 65 : 425-427, 2019 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_65_10_425)

Key words : Polyorchidism, Infertility, Testis, Cryptozoospermia, Testicular sperm extraction

緒 言

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る稀な疾患であり、本邦では調べた限り、現在まで26例が報告されている。ほとんどの症例で無痛性陰嚢腫瘍を主訴に発見されるが、その他、停留精巣、鼠径ヘルニアなど他疾患の精査・治療時に発見されることもある。本症例は不妊が受診契機となり、発見された右多精巣症の1例である。また、余剰精巣に対して摘出と同時に精巣内精子採取術 (testicular sperm extraction; TESE) を試みた自験例が本邦初であるため、文献的考察とともに報告する。

症 例

患 者 : 30歳, 男性

主 訴 : 挙児希望, 有痛性右鼠径部腫瘍

家族歴 : 特記事項なし

既往歴 : 急性扁桃腺炎, 気管支喘息

常用薬 : ホルモテロールフマル酸塩, モンテルカストナトリウム

現病歴 : 2年間の不妊および有痛性の右鼠径部腫瘍を主訴に前医受診し, MRIにて右鼠径部および同側陰嚢内に精巣を認め, 多精巣症と診断された。精査加療目的に同月当センター紹介受診となった。精液検査で全視野に運動精子1個のみ認め, 触診で右鼠径部に正常大精巣, 右陰嚢内に萎縮精巣をそれぞれ触知, ま

た左正常大精巣および grade 2 の精索静脈瘤を触知した。超音波検査にて右鼠径部精巣内に腫瘍を認めず, また血液検査にて精巣腫瘍マーカー陰性ではあったが, 患者と相談のうえ, 顕微受精のためのバックアップ目的で精子凍結保存を複数回施行の上, 右鼠径部精巣の悪性化のリスクを考慮し10月に右鼠径部精巣摘出術, 同精巣内精子採取術および左精索静脈瘤顕微鏡下低位結紮術の方針となった。

身体所見 : 右陰嚢内に萎縮精巣および右鼠径部に正常大精巣を触知した。左陰嚢内に正常大精巣および同側精索静脈瘤 grade 2 を触知した。

血液生化学検査 : 明らかな異常所見なし

内分泌学的検査 : 黄体形成ホルモン (LH) 9.8 mIU/ml (2.2~8.4), 卵胞刺激ホルモン (FSH) 22.9 mIU/ml (1.8~12.0), 総テストステロン 1.95 ng/ml (1.31~8.71)

腫瘍マーカー : HCG <0.1 mIU/ml (<3.0), AFP 2 ng/ml (<10.0)

超音波検査所見 : 左精巣 18 ml, 右陰嚢内精巣 5 ml, 右鼠径部精巣 15 ml, 辺縁整で内部に多発性の微小石灰化を伴っていた。明らかな腫瘍なし (Fig. 1)。

手術所見 :

①右鼠径部精巣摘出術および同側精巣内精子採取術 : 右外鼠径輪直上を3 cm 横切開し, 鼠径部精巣および陰嚢内精巣を創外へ脱転させ全体像を明らかにした。陰嚢内精巣は萎縮しており精索動静脈および精管・精巣上体の付着がみられたが, 鼠径部精巣は精

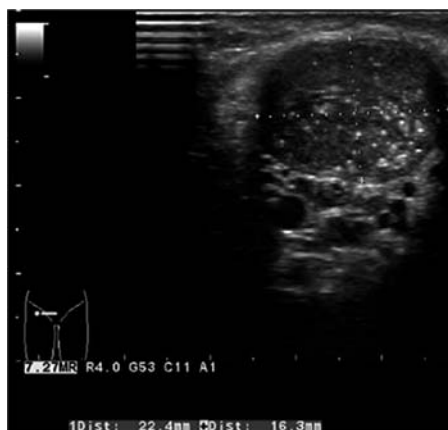


Fig. 1. Ultrasound findings of right inguinal testis.



Fig. 3. Right inguinal testis whose tunica albuginea was incised.

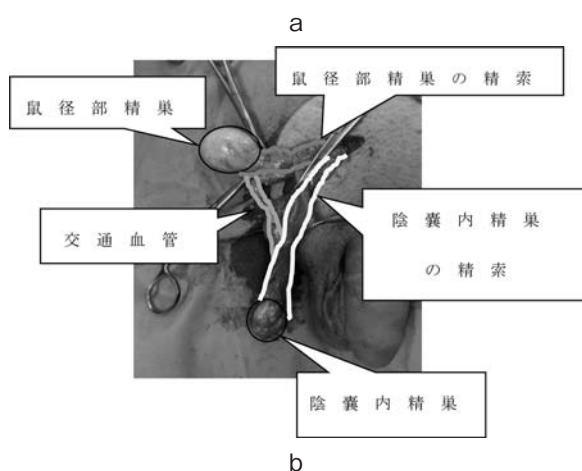


Fig. 2. a, b: Intraoperative findings.

管・精巣上体を欠いており精索動静脈のみ付着がみられた。また両精巣間に血管交通を認めた (Fig. 2a, b)。交通血管および鼠径部精巣動静脈を結紮・切断し、速やかに鼠径部精巣の白膜を赤道面で半周切開し精細管を観察、白色・細径の萎縮した精細管を認めた (Fig. 3)。術中検鏡で精細管内に精子を認めなかった。また陰嚢内精巣は陰嚢底に精巣固定を行った。

②左精索静脈瘤顕微鏡下低位結紮術：左外鼠経輪直上を 3 cm 切開し、精索を把持し手術用顕微鏡下に拡

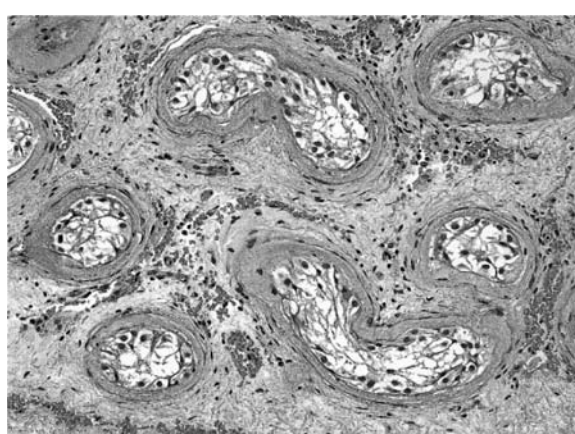


Fig. 4. HE staining of testicular tissue ($\times 400$). Pathological findings were extensive fibrosis. In the seminiferous tubule, there were Sertoli cells only. There were no malignancies.

大視野で動脈を 3 本温存、拡張した静脈を 7 本結紮、リンパ管を 2 本温存し終刀した。

病理診断：余剰精巣は組織学的には萎縮した精巣組織で広範な線維化を伴っており、精細管が残存する領域では、精細管の基底膜は好酸性に肥厚しており、精細管内に Sertoli 細胞のみ認められた。一部では精細管内や間質に微小石灰沈着がみられた。Johnsen's score count 1.5 相当であった。悪性所見は認められなかった (Fig. 4)。

術後経過：造精機能の回復を期待し、外来で精液検査フォローアップ中であるが術後 9 カ月後の精液検査所見では全視野で運動精子 20 個と増加傾向にあった。後日、妻は射出精子での顕微受精を行い、3 個採卵し胚盤胞を 2 個凍結した。子宮内膜調整後に凍結融解胚盤胞移植を行い臨床妊娠成立、現在妊娠経過は順調である。

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

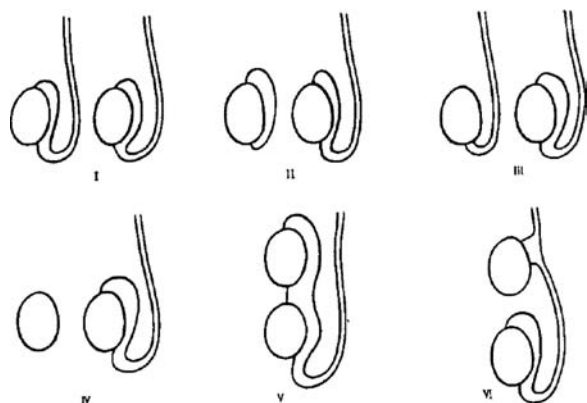


Fig. 5. Classification of the polyorchidism (文献4より引用).

組織学的に診断された先天奇形と定義されている。1895年に Lane らによって初めて病理学的に証明された。海外では Bergholz らによって2009年に meta-analysis として140例を¹⁾、本邦では中神らによって26例を集計・報告され²⁾本症例は本邦での27例目となる。

余剰精巣の発生機序としては生殖隆起の分割過程の異常・生殖隆起の重複・中腎の部分的な退化の説などがあるが、今もなお不明な点が多いのが現状である³⁾。

形態学的分類として海外では Singer の分類、Bergholz の分類などが使用されるが、本邦では豊田の分類 (Fig. 5) が多く使用されている。豊田らは精巣、精巣上体、精管の有無により分類している。本症例では陰嚢内精巣のみ精巣上体・精管の付着を認めた (豊田分類IV)。

多精巣症の治療は余剰精巣を摘出することが多い。小さいサイズの精巣や精管と交通のない精巣を余剰精巣とし、余剰精巣の造精能の有無・悪性化のリスクを考慮して余剰精巣摘出を検討する。本邦における余剰精巣を温存した症例は26例中4例のみであった⁴⁻⁶⁾。

余剰精巣の造精能に関して Bergholz らの集計では50%程度は造精能があることが報告されているが、余剰精巣を摘出した過去22例 (85%) の報告は悪性化を危惧して摘出していた。Bergholz らは悪性腫瘍が8例 (5.7%)、全例停留精巣であったと報告している¹⁾。本邦26例中腫瘍化した症例は2例 (7.4%) であり、鼠径管内の胎児性癌⁷⁾と腹腔内の混合型胚細胞腫瘍⁸⁾で陰嚢内の多精巣症で悪性化の報告はなかった。

本症例は30歳であり鼠径部精巣が余剰精巣であり術中に精管と交通がないことを確認し、腫瘍化の可能性・疼痛改善目的に右鼠径部精巣摘除術施行した。不妊を主訴として来院された患者であり鼠径部精巣の造

精能および精路が不明であったため、右鼠径部精巣摘除術施行と同時に同精巣に対する TESE を検討した。

余剰精巣内に腫瘍が存在する可能性も考慮し腫瘍マーカーを測定したがいずれも陰性であり、エコー上も明らかに腫瘍を疑わせる所見は認めなかった (Fig. 1)。腫瘍の存在は否定できないことを説明したうえで、患者が TESE を希望されたため余剰精巣摘出と同時に TESE を試みたが精子回収不能であった。一方 grade 2 の精索静脈瘤に対し、顕微鏡下低位結紮術を施行した。

外来にて精液検査のフォローアップを行い、術後10カ月後に運動精子の増加を認めた。精液所見改善の要因としては右鼠径部余剰精巣の摘出に伴う血流改善の可能性や精索静脈瘤にともなう鬱血の改善が考えられた。新鮮射出精子を用いた顕微授精を施行し妊娠することに成功した。

結 語

不妊を主訴に診断された本邦1例目の多精巣症を経験したので報告した。

本症例は第57回日本泌尿器科学会神奈川地方会において発表した。

文 献

- 1) Bergholz R and Wenke K: Polyorchidism: a meta-analysis. *J Urol* **182**: 2422-2427, 2009
- 2) 中神智和, 土岐 彰, 鈴木孝明, ほか: 多精巣症の治療方針. *日小外会誌* **53**: 252-257, 2017
- 3) Lawrentschuk N and Mac Gregor RJ: Polyorchidism: a case report and review of literature. *ANZ J Surg* **74**: 1130-1132, 2004
- 4) 豊田 泰, 丸山邦夫: 多睾丸症について. *日泌尿会誌* **65**: 181-188, 1974
- 5) 黒田加奈美, 白井将文, 加瀬隆久, ほか: 多睾丸症の1例. *泌尿器外科* **3**: 647-650, 1990
- 6) 塩野 裕, 岸本幸一, 古田 希, ほか: 停留精巣を契機に発見された多精巣症の1例: 本邦報告例との比較を中心に. *日泌尿会誌* **93**: 707-709, 2002
- 7) 梅田弘幸, 嘉村泰邦, 石橋 哲, ほか: 両側多精巣症に発症した胎児性癌の1例. *日泌尿会誌* **89**: 441-444, 1998
- 8) 熊谷 祐, 朝蔭直樹, 鈴木貴久, ほか: 茎捻転で発症した多精巣症に伴う後腹膜原発の混合型胚細胞腫瘍の1例. *日臨外医会誌* **69**: 2129-2134, 2008

(Received on January 15, 2019)

(Accepted on June 11, 2019)