

単 辜 丸 症 の 臨 床

千葉大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 島崎 淳教授)

布 施 秀 樹
皆 川 秀 夫
伊 藤 晴 夫
島 崎 淳

CLINICAL OBSERVATION ON MONORCHISM

Hideki FUSE, Hideo MINAGAWA, Haruo ITO and Jun SHIMAZAKI

From the Department of Urology, School of Medicine Chiba University, Chiba, Japan

(Director: Prof. J. Shimazaki)

In the last 22 years (1960~1981), 47 cases of monorchism were experienced at our University Hospital, i.e., in 9.6% of the 488 sides operated for cryptorchism. The majority, 24 cases, were under the age of 5 years at the first medical examination. The defect was on the left side in 32 cases and on the right side in 15 cases. Other anomalies besides monorchism were contralateral cryptorchism in 2 cases, hypospadias in 2 cases, ipsilateral inguinal hernia in 1 case, ipsilateral renal pelvic duplication in 1 case and XO/XY mosaicism of sex chromosome in 1 case.

Oligozoospermia and normozoospermia were noted in 2 and 4 adult cases, respectively. Histological findings of contralateral testes obtained on three adults were germinal aplasia, hypospermatogenesis and normal spermatogenesis.

Key word: Monorchism

緒 言

単辜丸症は、比較的まれな疾患とされてきたが、最近その報告例は増加の傾向にある。本邦では、1939年、小林¹⁾が、最初に報告して以来、1976年松岡ら²⁾が、113例、1979年、石戸ら³⁾が、148例を集計している。

われわれは、千葉大学医学部泌尿器科において、1960年より1981年までの22年間に、47例の本症を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

対象ならびに方法

1960年より1981年までに千葉大学医学部泌尿器科において47例の単辜丸症を経験した。それらにつき、初診時年齢、患側、合併症などにつき検討した。また成人若干例に、精液検査⁴⁾および対側辜丸生検⁵⁾を施行した。

結 果

1) 初診時年齢および患側: 0~5歳が24例と過半数を占め、6~9歳、20歳以上が各8例、10~19歳が7例であった。患側、左側32例、右側15例であり、左右比は、2.1:1であった (Table 1)。

2) 停留辜丸に対する手術は、22年間で、412症例、488例におこない、その9.6%を占めた (Table 2)。

3) 欠損型: 井川ら⁶⁾の分類によると、I型3例、II型18例、III型24例、不明2例であり、III型が、過半数を占めた (Table 3)。

4) 合併症: 対側停留辜丸、尿道下裂が各2例、同側鼠径ヘルニア、同側重複腎盂および性染色体型がXO/XYのモザイクを呈したものが、それぞれ1例あった。

5) 精液所見ならびに対側辜丸組織像: 成人6例に

Table 1. 初診時年齢および患側

年齢	患側	左側	右側	計
0～5		14	10	24
6～9		7	1	8
10～19		6	1	7
20歳以上		5	3	8
計		32	15	47

ついて精液検査を施行し、4例が、精子濃度 5,000 万/ml 以上であったが、2例は、3,000 万/ml 前後と乏精子症であった。成人 3 例について、対側睾丸を組織学的に検査した。germinal aplasia, hypospermatogenesis 各 1 例、正常所見を示すものが、1 例あった (Table 4)。

Table 2. 停留睾丸手術例

年度	両側	左側	右側	計
1960～1964	5	13	7(1)	25(1)
1965～1969	12	20(2)	27(2)	59(4)
1970～1974	20(1(左))	46(11)	23(5)	89(17)
1975～1979	28(1(右))	71(11)	57(4)	156(16)
1980, 1981	11	33(7)	39(2)	83(9)
計	76 (1(左) 1(右))	183(31) 16.9%	153(14) 9.2%	412(47) 11.4% [488(47) 9.6%]

Table 3. 欠損型と患側

	左側	右側	計
I 型	3	0	3
II 型	14	4	18
III 型	13	11	24
不明	2	0	2
計	32	15	47

考 察

単睾丸症の発生頻度は、米国では、5,000人に1人、0.02%とされている⁹⁾。本邦では、石戸ら³⁾の報告以後のもの⁷⁻¹²⁾、および自験例を加えると、現在までに224例が報告されている。

本症は、ほとんどが停留睾丸の手術時に判明するが、

Table 4. 精液所見ならびに対側睾丸組織像

症例	手術時年齢	患側	精液所見			対側睾丸組織像	子供
			精液量(ml)	精子濃度(×10 ⁶ /ml)	運動率(%)		
1	33	右				germinal aplasia	(一)
2	17	右	2.5	56	16	hypospermatogenesis	未婚
3	19	左	3.0	64	82		未婚
4	33	左	2.0	63	60		(十)
5	19	左	1.0	33	40	正常	未婚
6	24	左	2.0	30	66		(十)
7	26	左	3.2	105	18		(一)

その発現頻度は、柿沢ら¹³⁾は、9.8%、高橋ら¹⁴⁾は、6.4%、吉本ら¹⁵⁾は、6.9%としている。自験例では、9.6%と諸家の報告より、やや多い傾向にあった。欧米では、3～4%と、いくぶん低率である。

Grumbach ら¹⁶⁾は、睾丸発生障害を、性腺発生時期の観点より、以下のごとく分類している。1) gonadal aplasia or gonadal dysgenesis: 内性器発生 critical stage 以前の性腺の発生障害によるもので、pure gonadal dysgenesis は、これに属する。2) agonadism: gonad の髄質部が Müllerian duct の発育を抑え、Wolffian duct を残すまで機能を発揮し

たが、外陰部の発育を充分おこなう前に消失。3) congenital anorchia with pseudohermaphroditism: Müllerian duct 分化を抑えきらず、また外陰部を発育させる前に消失。4) congenital anorchia with or without eunuchoidism: 外陰部まで完全に男性型になってから消失。

本症は、3)および4)に相当するが、睾丸の消失する原因として、現在2つの考え方があ。まず第1に、先天的に発育不全にある睾丸が萎縮消失したとするものである。停留睾丸で睾丸が腹腔内にあり、精管、副睾丸が鼠径部まで下降している例があり、この完全分

離型の停留睾丸は、發育不全が顕著であり、消失する可能性は十分ある。すなわち、副睾丸、精管を残して發育不全の睾丸が消失したのが本症とするものである¹⁷⁾。単睾丸症は、停留睾丸の極型ということになる。つぎに、一旦、正常に発生した睾丸が、後天的な原因により、消失したとする意見がある。その原因として、なんらかの血管性病変あるいは、感染¹⁸⁾、梅毒、毒素による炎症¹⁹⁾などが挙げられているが、決定的なものはない。松岡ら²⁾は、精管盲端部が、血管に富む結合組織成分よりなっていることは、炎症あるいは、血行障害に起因することを示唆するとしている。

患側は、左側に多いとされており、自験例も、左右比は、2.1:1と左側に多かった。停留睾丸に対する率をみても、あきらかに左側優位であった (Table 2)。本症を含めて、urogenital ridge に由来する器管の異常が、左側に多く発生する傾向は、興味深い。

本症は、睾丸欠損のみという症例は、少なく、同側の副睾丸あるいは、精管の欠損をみることが多い。井川ら⁵⁾は、副睾丸および精管の存否より本症をⅠ、Ⅱ、Ⅲ型に分類している。自験例では、Ⅲ型が過半数を占めたが、諸家の報告では、Ⅱ型がもっとも多いとされる。

合併症は、本邦において自験例も含めて、対側停留睾丸8例、尿道下裂および精囊欠損、各4例、対側鼠径ヘルニア、同側鼠径ヘルニア、同側尿管欠損、各2例の順であった (Table 5)。Counsellor ら²⁰⁾は、本症に同側の鼠径ヘルニアは合併しないとして、ヘルニアの存否が、停留睾丸と睾丸欠損症の鑑別に有用としたが、Pearman²¹⁾は、5例中1例に、Rea²²⁾は、6例全例に同側のそれをみており、自験例でも1例あ

た。鼠径ヘルニアが存在しても、本症を否定できないだろう。同側の腎、尿管の欠損は、本邦では、2例 (0.97%) の報告をみるにすぎず、まれなものといえるが、単腎の場合、生活指導も必要であり、Ivp は、試みてよい検査と考える。

本症の造精機能は、停留睾丸と異なり、対側睾丸に異常を認めず、ほぼ正常とするものもあるが²³⁾、Woodhead は²⁴⁾、本症も停留睾丸と同様に、乏精子症を30~40%に認め、対側睾丸の先天性異常を指摘している。ちなみに、自験例でも、6例中2例が、乏精子症であった。しかし、当教室の停留睾丸例²⁵⁾の成績と比較すると、正常例の割合が多かった。少数例であり、多少の無理はあるが、以下を推察した。本症で対側睾丸にも異常の存在することは、前述の睾丸消失の原因のうち、前者が示唆され、またいっぽうで、本症の対側睾丸の造精機能が、先天性障害のより少ないと考えられる停留睾丸例のそれに優ることは、後者では、患側の対側へのなんらかの後天的な影響、たとえば免疫学的な反応の存在²⁶⁻²⁸⁾も、考えられよう。

陰嚢内および鼠径部に睾丸を触知しない場合、本症と停留睾丸との鑑別は、重要である。停留睾丸の悪性腫瘍の発生率が、正常睾丸にくらべて50倍と高く、また対側睾丸への影響もあるとされるからである²⁹⁾。

androgaphy³⁰⁾、inguinal herniography³¹⁾、pelvic pneumography³²⁾あるいは、選択的精巣動脈造影³³⁾などが試みられるが、いずれも確定診断を下すことは、困難と考えられ、観血的方法に頼らざるをえない。

剖検時、腎基部に睾丸をみ出した例をあげ、後腹膜腔全域の検索を主張するものもある³⁴⁾。しかし、臨床上、全例に施行することは、手術侵襲より实际的とはいいがたい。松岡ら²⁾は、精系血管、精管、副睾丸のうち、いずれか、ひとつが存在すれば、睾丸は、その近傍にあり、また腹部停留睾丸の多くは、内鼠径輪付近にあるとされている³⁵⁾ことより、3者および内鼠径輪周辺の検索で、睾丸を発見できない時は、本症と診断してよいとしており、自験例も、同様の方法でおこなった。なお、Levitt ら³⁶⁾は、精系血管以外の後2者は、睾丸と離れて存在しうるとし、その近傍の検索では、不十分で、後腹膜腔全域を探索が必要であるとしている。

いずれの精系付属物も認めない場合は、腎茎付近までの後腹膜腔の検索を要しよう。

結 語

千葉大学医学部泌尿器科において1960年より1981年までの22年間に経験した単睾丸症47例について検討を

Table 5. 本邦報告224例 (自験例も含む)における合併症

合併症	例数
対側停留睾丸	8
尿道下裂	4
精囊欠損	4
対側陰嚢水腫	3
性染色体異常	3
同側鼠径ヘルニア	2
対側鼠径ヘルニア	2
同側腎・尿管欠損	2
対側重複腎盂尿管	1
対側發育不全腎	1
両側鼠径ヘルニア	1
潜在脊椎破裂	1
左斜頸	1
Ehlers-Danlos 症候群	1
計	34

加えるとともに若干の文献的考察を加えた。

なお、本論文の要旨は、第27回日本不妊学会総会において発表した。

文 献

- 1) 小林 豊：先天性辜丸欠損症及び副辜丸輸精管欠損症に就て。体性 26：421～429, 1939
- 2) 松岡 啓・河田栄人・上村計夫・大川内利彦・野田進士：単辜丸症の2例。西日泌尿 38：302～310, 1976
- 3) 石戸則孝・赤枝輝明・大橋輝久・松村陽右・大森弘之：単辜丸症の臨床—単辜丸症9例を中心とした文献的考察—。西日泌尿 41：671～675, 1979
- 4) 布施秀樹・皆川秀夫・伊藤晴夫・島崎 淳：男子不妊症の臨床的観察。日不妊会誌投稿中
- 5) 井川欣市・島村昭吾・安達 徹：同側腎・尿管欠損症を伴った先天性偏側辜丸欠損症。臨床皮泌 19：1317～1321, 1965
- 6) Goldberg LM, Skaist LB and Morrow JW: Congenital absence of testes: Anorchism and monorchism. J Urol 111：840～845, 1974
- 7) 米田勝紀・栃木安水・前田 真・鈴木紀元・加藤広海・朴木繁博：単辜丸症の7例。日泌尿会誌 71：640, 1980
- 8) 湯浅健司・桜井紀嗣・乾 毅：単辜丸症の3例。日泌尿会誌 71：811, 1980
- 9) 中嶋和喜・中下英之助・大川光央・黒田恭一：辜丸欠損症の12例。泌尿紀要 26：1423～1426, 1980
- 10) 柿木敏明：単辜丸症の1例。西日泌尿 43：192, 1981
- 11) 川村繁美・小倉裕幸・高田 耕・佐々木秀平：単辜丸症の1例。日泌尿会誌 73：406, 1982
- 12) 近藤捷嘉・藤田幸利・高本 均・亀井義広：単辜丸症の6例。日泌尿会誌 73：952, 1982
- 13) 柿澤至怒・大田黒和生：辜丸無形成，辜丸形成不全および辜丸萎縮の51例。医療 増刊号 27：590, 1973
- 14) 高橋 章・宮野 武・平井慶徳：単辜丸症(monorchism)。日小児外科誌 11：387～391, 1975
- 15) 吉本 純・高田元敬・藤田幸利：単辜丸症の9例。西日泌尿 40：77～81, 1978
- 16) Grumbach MM and Barr ML: Cytologic tests of chromosomal sex in relation to sexual anomalies in man. Recent Progr Hormone Res 14：255～334, 1958
- 17) 市川篤二・熊本悦明：先天性辜丸欠損症，性器の先天性異常(I)。日泌尿会誌 52：453～460, 1961
- 18) Melicow MM and Uson AC: A periodic table of sexual anomalies. J Urol 91：402～425, 1964
- 19) Thorek M and Thorek P: Anorchidism (Absence of the testicle) with case report. J Urol 30：343～351, 1933
- 20) Counseller VS and Walker MA: Congenital absence of testes (Anorchia). Ann Surg 98：104～109, 1933
- 21) Pearman RO: Congenital absence of the testicle: Monorchism. J Urol 85：599～601, 1961
- 22) Rea CE: Congenital anorchia, with a report of six probable cases of monorchia. Surgery 4：376～383, 1938
- 23) Tibbs DJ: Unilateral absence of the testis. Brit J Surg 48：601～608, 1961
- 24) Woodhead DM: Fertility of patients with solitary testes. J Urol 109：66～67, 1973
- 25) 布施秀樹・皆川秀夫・伊藤晴夫・島崎 淳：停留辜丸の予後。日不妊会誌 投稿中
- 26) 公平昭男：反対側辜丸への免疫学的影響，特に停留辜丸について。日泌尿会誌 73：541～542, 1982
- 27) 山崎 彰：停留辜丸における免疫学的研究。日不妊会誌 27：89～103, 1982
- 28) Ludwig G and Potempa J: Der optimale Zeitpunkt der Behandlung des Kryptorchismus. Dtsch Med Wschr 100：680, 1975
- 29) Campbell MF: Anomalies of the genital tract. Urology, 3rd Edition, edited by Campbell MF and Harrison JH, Philadelphia: Saunders WB Co 2：1625～1626, 1970
- 30) Lunderquist A and Rafstedt S: Roentgenologic diagnosis of cryptorchism. J Urol 98：219～223, 1967
- 31) White JJ, Parks LC and Haller JA: The inguinal herniogram: A radiologic aid for accurate diagnosis of inguinal hernia in infants. Surgery 63：991～997, 1968
- 32) 松本 泰・和久正良：停留辜丸の研究。腹部停留

辜丸に対する pelvic pneumography の診断的
価値. 日泌尿会誌 65 : 595, 1974

- 33) Ben-Menachem Y, DeBerardinis MC and Salinas R: Localization of intra-abdominal testes by selective testicular arteriography; a case report. J Urol 112 : 493~494, 1974
- 34) Whitehorn CA: Complete unilateral Wolffian duct agenesis with homolateral cryptorchism. J Urol 72 : 685~692, 1954
- 35) Lazarus JA and Marks MS: Anomalies

associated with undescended testis. Complete separation of a partly descended epididymis and vas deferens and an abdominal testis. J Urol 57 : 567~574, 1947

- 36) Levitt SB, Kogan SJ, Engel RM, Weiss RM, Martin DC and Ehrlich RM: The impalpable testis: A rational approach to management. J Urol 120 : 515~520, 1978

(1982年12月17日受付)