

単 睾 丸 症 例

京都大学医学部泌尿器科学教室（主任 稲田 務教授）

蛭 多 量 令
高 山 秀 則

MONORCHIDISM : REPORT OF A CASE

Kazuyoshi EBISUTA and Hidenori TAKAYAMA

From the Department of Urology, Faculty of Medicine, Kyoto University

(Director : Prof. T. Inada, M. D.)

Y. H., aged 25, was hospitalized because of the absence of the right testicle. On examination the right testicle and epididymis were not palpated. No hernia could be found on this side. The left testicle was in the scrotum and normal in size. He was of average development and showed no other abnormality. On operation the testis could be found neither in the inguinal canal nor in the retroperitoneal space. However, the vas was found to be ending blindly in about middle of the inguinal canal, and the characteristic leash of spermatic vessels ran to this blind end.

This case was the 21st reported one in Japan and statistical review was briefly made.

1. 緒 言

泌尿生殖器系の奇形は他の臓器のそれと比べて比較的多いとされているが、先天性単睾丸症は極めて稀な疾患で、本邦では僅か20例の報告があるのみである。ここに我々は25才の右側睾丸および副睾丸欠損例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

2. 症 例

患者：橋○某，25才，男。

初診：昭和40年12月7日

主訴：右側陰囊内容欠如

家族歴，既往歴：特記すべきものなし。

現病歴：生来右陰囊内容欠如に気付いていたが，何ら自覚症状もないので放置していた。

現症：体格，栄養中等度。胸腹部は打・聴・触診上異常を認めない。外性器・陰毛の発育は正常で，左陰囊内容は正副睾丸および精管共に触診上異常なく，右陰囊内容は全く欠如し，鼠径部にてもそれらしきものを触れず，ヘルニアも認めない。前立腺は触診上正常で異常は認められない。

検査成績：血圧，赤沈，心電図正常。一般血液検査，血清電解質および肝機能検査はすべて正常である。腎機能においても，PSP 試験正常で，排泄性腎盂撮影像でも両側ともに排泄良好で，上部尿路の奇形は認められない。

内分泌学的検査：尿中 17KS 3日間連続測定 8.45～14.5mg/dl(平均 12.3mg/dl)。尿中 17 OHCS 遊離型 1.20mg/day，全量 26.5mg/day。尿中 Gonadotropin 12m.u.u./day。

以上の所見より右停留睾丸の診断のもとに手術を施行した。

手術所見：腰椎麻酔のもとに，回盲部より右鼠径部に至る旁腹直筋切開にて腹壁を開き，後腹膜腔に達するに略々正常走行の精管が血管を伴って内鼠径輪に達し，鼠径管内を追求するに鼠径管の略々中央部にて盲端となつて終っており，血管はこの部で密集して囊状塊（所謂 leash あるいは cluster）の状態を呈し，その下端は索状の結合組織となつて陰囊内起始部に達していた（図1）。以上の精管走行の周囲には睾丸，副睾丸らしきものは発見出来ず，さらに上部の後腹膜腔を精査したが，やはりそれらしき組織は見出せず，精管・睾丸血管を含めて盲端部組織を摘除し（図2），創

病理組織学的所見：右精管盲端部周囲組織は小血管に富む結合織を認めるのみで、睪丸・副睪丸らしき組織は認められなかった（図4）。精管そのものは正常の組織所見を呈していた。なお対側睪丸組織は正常であった。

先天性の睾丸欠損症には一側並に両側の欠損があり、正確には睾丸が両側共に完全に欠如した場合は睾丸欠損症といい、偏側睾丸の欠損の場合に単睾丸症として命名されるべきであるが、広義の意味において単睾丸症も睾丸欠損症として取扱っているものもある¹¹⁾。

1564年 Cabral²⁾ が剖検例にて 両側辜丸欠損の第1例を報告して以来、欧米においては比較的多くの報告があり、Campbell³⁾ は10,712例の小児剖検例中、偏側欠損8例、両側欠損26例

単睾丸症において左右の出現率をみるに、Gross⁸⁾ は24例中左18例、右6例、Counsellar⁴⁾ は7例中左4例、右3例、Campbell³⁾ は8例中左4例、右4例、Pearman²²⁾ は4例中左3例、右1例と報告し、Williams³¹⁾ は左側の方が右側より2倍多いと述べている。本邦においては自験例を含めて記載の明らかなもの20例についてみると、左側14例、右側6例で、左側に多く認められた。本症のみならず、urogenital ridge に起原する異常が、左側に多く発するという傾向は興味ある事実であると思われる。

表に示すごとく本邦例にては、副辜丸では欠損 7 例、發育不全 4 例で、嚢胞形成を 1 例に認

報 告 者	年次	年令	欠損側	副の 睪有 丸無	精の 有 管無	對の 睪 側丸	外陰部	そ の 他
1. 小 林	昭14	27	左	+				
2. 堀 尾 他	18	24	左	發育不全	發育不全	正	常	{ 右腎發育不全, 左精囊欠損(?), 斜頭
3. 田 沼	25	46	左	發育不全	+	正	常	
4. 栗栖・中島	31	30	左	—	+			
5. 斯波・小西	〃	20	左	—	+	正	常	
6. 石山・熊本	34	10	右	發育不全	+	正	常	
7. 市 川 他	36	10	右	高度發育不全	+	正	常	
8. 〃	〃	17	左	—	+	正	常	
9. 志 田	36	3	左					
10. 〃	〃	24	左	囊胞形成				
11. 片山・石川	37	33	右	—	+	正	常	
12. 勝 目	〃	20	左		+			
13. 斯 波	〃	4	左		+			
14. 〃	〃	16	左		+			
15. 勝 目	〃	28						
16. 森 田	〃	52	右	—	+	腹部停留	正 常	
17. 入 沢 他	38	21	左	+	+	正 常	正 常	
18. 〃	〃	20	左	+	+	正 常	正 常	
19. 〃	〃	39	左	—	+	正 常	正 常	
20. 鳥 居 他	39	26	右	+	+			
21. 自 驗 例	41	25	右	—	+	正 常	正 常	

左風径ヘルニア

一：欠 捐

めた。精管では欠如するものは1例もなく、ただ、發育不全1例を認めたのみであり、外陰部に異常を認めたものも全くなかった。その他の臓器に異常を合併したのは堀尾等⁷⁾の報告した右腎發育不全、左精囊欠損(?), 斜頸を有した1例のみであるが、ただこの例も含めて3例に斜頸を合併しているのは興味あることと思われる。この他、鼠径ヘルニアの合併について欧米では Counsellar⁴⁾ は7例中1例、Tibbs²⁸⁾ は8例中1例、Pearman²²⁾ は4例中1例に認め、Rea²³⁾ の6例全例に認めたという報告もあるが、本邦においては入沢等¹⁰⁾の1例の報告をみるのみである。

次いで対側睾丸についてであるが、極度に萎縮して両側睾丸欠損症と同様な類官官症状を呈すこともあり得るが、大抵は正常に發育し、内分泌学的異常を認めないのが普通で、実際に本邦にては腹部停留1例を認めたのみで、他はすべて略々正常と記載されている。本症例でも組織学的に正常の造精過程および間細胞像を呈していた。

病 因

種々論ぜられてはいるが、未だ解明されていないのが現状である。近年性腺および性器の發生異常に関する研究が色々となされ、従来単に先天性異常として考えられていた本疾患を發生病理学的な立場から改めて見返され、系統的な性腺發生異常の一現象として考察されるようになってきた。そこで、本症を理解する上に正常の性腺性器發生過程を知っておく必要があると思われるので略述すると、まず性腺は urogenital ridge より増殖隆起してきた genital ridge から發生するが、男子においては、この genital ridge の細胞は2群に分れ、外層を secondary sex cord, cortex といい、後に睾丸白膜となり、内層は primary sex cord, medulla といい、盛んに増殖發育して内腔を有する管となり、後に睾丸実質である精細管となる。この睾丸より分泌されると言われる所謂 testicular morphogenic secretion が性器分化の方向を決定づけると言う。このホルモンは Melicow & Uson²⁰⁾によると; 1. 睾丸下降の助長 2. 睾丸

固有膜の發育促進 3. Wolff 氏管系發育促進 4. Müller 氏管系發育抑制という作用があり、結局男子では Wolff 氏管のみが發達し男子性器を作り、Müller 氏管は退化消失していくのである。

従って testicular morphogenic hormone を分泌する睾丸が以後の性分化の方向を決定づけるすべての鍵をにぎることとなり、この睾丸の種々の障害により、その分泌に異常を起せば、当然性器分化に異常を來すことが考えられ、その睾丸障害の發生時期や障害の程度などにより、種々な型の性器異常が發現する可能性がある。

ここに本症を考えるに、副睾丸、精管あるいは精囊をすべて欠損する例はなく、いずれ一つかは残存していることから考えると、testicular morphogenic secretion が起った後に生じた、つまり、睾丸が分化した後に生じたものと考えられ、その後何らかの原因にて睾丸組織が退化消失したものといえよう。この原因は不明であるが、Melicow & Uson²⁰⁾は血管性の變化或は特異的な virus によるのではないかといっており、Tibbs²⁸⁾は睾丸血管の梗塞によるのではないかと述べ、Marble¹⁹⁾は流行性耳下腺炎、梅毒などの系統的疾患あるいは循環障害などによると述べている。Counsellar⁴⁾も先天性梅毒、流行性耳下腺炎の例を報告し、睾丸發育障害の一因子になるのではないかといっている。しかし、性細胞の先天性に欠除した場合もあるとの記載も見られる¹¹⁾。

診 断

一般に本症は停留睾丸の診断のもとに手術され、初めて確定診断のつく場合が大部分である。診断にあたっては、睾丸を看過したのではないかということが常に問題となり、停留睾丸よりの癌發生率が高いという点より慎重をきすものである。

發生学上睾丸と副性器とは密接な関係にあるということを考えると、睾丸あるいは副睾丸のみが精管より離れてきわめて遠位に位置することは考え難いが(Counsellar⁴⁾)、しかし睾丸と副睾丸が何らかの原因で分離することも

ごく稀に認められることで、事実 Badenoch¹⁾ は 42 例の停留睾丸中 3 例に、Lazarus & Marks¹⁸⁾ は 1 例に副睾丸あるいは精管が略々正常位置に認められるに拘らず、睾丸のみが腹腔内に見出された例を報告している。しかしこのような場合でも、Badenoch¹⁾ によると両者間の距離は同一手術野内で見出される範囲だとしており、Felix⁵⁾ は内鼠径輪附近にあるのが普通だといっている。実際に今までの例では常に内鼠径輪の近くで見出されている。

従って診断にあたってはまず精管を見出し(単睾丸症にて精管を欠損したものは 1 例もなかった)、これに沿って追求し、内鼠径輪附近を中心に探して睾丸を発見出来ない場合は睾丸欠損と考えてよいと思う。しかし Wolff 氏管系の完全欠損のような場合は事情は異なり、Whitehorn³⁰⁾ の報告にもあるごとく、睾丸の rest を Gerota の筋膜中に見出した例もある。

Pearman²²⁾ は精管が存在しない場合でも、睾丸動静脈のみ認め、睾丸を見出せない場合は、他の部に睾丸は殆んど存在し得ないと述べ、Tibbs²⁸⁾ は精管の盲端部を認め、ここに睾丸動静脈の特徴的な leash を見出せば睾丸欠損は殆んど確実だとしている。本症例ではこの特徴的な状態を呈していた。

4. 結 語

われわれ右陰囊内容欠如を主訴として来院した 25 才男子に、試験開腹により右睾丸欠損を確認し、症例を報告するとともに、統計的文献的考察を加えた。

本症例の要旨は第 37 回日本泌尿器科学会関西地方会において報告した。

(稿を終るにあたり恩師稲田務教授、酒徳治三郎助教授の御指導御校閲に深謝致します。)

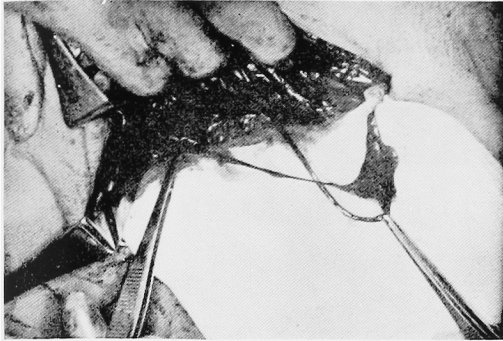
文 献

- 1) Badenoch, A. W. : Surg. Gynec. & Obst., 82 : 471, 1946.
- 2) Cabral : Amelar, R. D. : J. Urol., 76 :

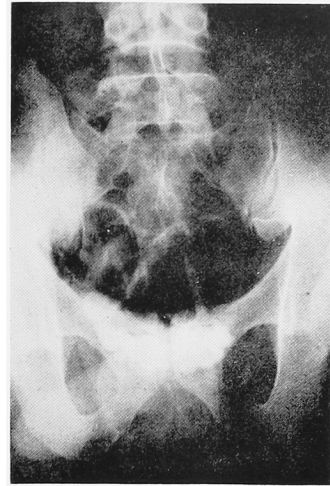
174, 1956 より引用.

- 3) Campbell, M. F. : Urology, W. B. Saunders Co. Philadelphia and London, Vol. II, 1770, 1963.
- 4) Counsellar, V. S., Nichols, D. R. & Smith, H. L. : J. Urol., 44 : 237, 1940.
- 5) Felix : 4) より引用.
- 6) Gross, R. E. : 31) より引用.
- 7) 堀尾・安田・辻 : 日泌尿会誌, 36 : 118, 1944.
- 8) 市川・小野田・熊本・広瀬 : 日泌尿会誌, 51 : 428, 1960.
- 9) 市川・熊本 : 日泌尿会誌, 52 : 453, 1961.
- 10) 入沢・白井・那須 : 日不妊会誌, 9 : 49, 1964.
- 11) 石神 : 日本泌尿器科全書, 6 : 7, 東京, 南江堂, 1960.
- 12) 石山・熊本 : 日泌尿会誌, 51 : 102, 1960.
- 13) 片山・石川 : 日泌尿会誌, 53 : 569, 1962.
- 14) 勝目 : 日泌尿会誌, 54 : 97, 1963.
- 15) 勝目 : 日泌尿会誌, 54 : 761, 1963.
- 16) 小林 : 体性, 26 : 421, 1939.
- 17) 栗栖・中島 : 日泌尿会誌, 49 : 489, 1958.
- 18) Lazarus, J. A. & Marks, M. S. : J. Urol., 57 : 567, 1947.
- 19) Marble, E. J. : Surg., 39 : 67, 1956.
- 20) Melicow, M. M. & Uson, A. C. : J. Urol., 91 : 402, 1964.
- 21) 森田・島村 : 日泌尿会誌, 54 : 1037, 1963.
- 22) Pearman, R. O. : J. Urol., 85 : 599, 1961.
- 23) Rea, C. E. : Surg., 4 : 376, 1938.
- 24) 斯波・小西 : 臨床皮泌, 10 : 765, 1956.
- 25) 斯波・国島 : 日泌尿会誌, 54 : 758, 1963.
- 26) 志田 : 日不妊会誌, 6 : 185, 1961.
- 27) 田沼 : 日泌尿会誌, 41 : 190, 1950.
- 28) Tibbs, D. J. : Brit. J. Surg., 48 : 601, 1961.
- 29) 鳥居・松本・石川 : 日泌尿会誌, 56 : 346, 1965.
- 30) Whitehorn, C. A. : J. Urol., 72 : 685, 1954.
- 31) Williams, B. L. & Lee, J. : Brit. J. Urol., 28 : 95, 1956.

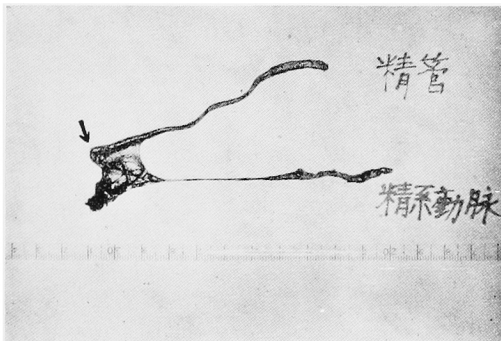
(1966年5月23日受付)



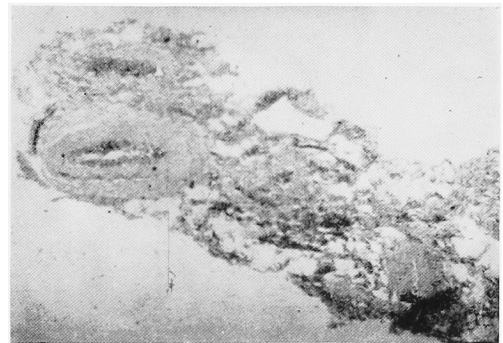
第1図 右精管は鼠径管中央部にて盲端に終り，
精系動静脈は leash の状態を呈している。



第3図 精囊撮影像。



第2図 盲端に終る精管（矢印）と精系血管。



第4図 精管盲端部周辺組織像（H E 染色）