

辜丸欠損症の12例

金沢大学医学部泌尿器科学教室（主任：黒田恭一教授）

中 嶋 和 喜
中 下 英 之 助
大 川 光 央
黒 田 恭 一ABSENCE OF TESTES: 11 CASES OF MONORCHISM
AND 1 CASE OF ANORCHISM

Kazuyoshi NAKAJIMA, Einosuke NAKASHITA,

Mitsuo OHKAWA and Kyoichi KURODA

From the Department of Urology, School of Medicine, Kanazawa University

(Director: K. Kuroda)

Last 10 years (1970-1979), 11 cases of monorchism and 1 case of anorchism were diagnosed out of the 158 cases of the operations for cryptorchism.

During the operations of the 11 cases of monorchism, both the vas deferens and epididymis were identified in 3 cases, only the vas deferens was identified in 5 cases, both the vas deferens and epididymis were absent in 3 cases.

One case of anorchism, the vas deferens was identified bilaterally, but no epididymis was found.

緒 言

辜丸欠損症は従来比較的まれな疾患といわれてきたが、停留辜丸手術の増加とともに、最近その報告例は増加しつつある。本邦においても、自験例も含め単辜丸症の報告は150例を越え、また無辜丸症は10例を数える¹⁾。われわれは金沢大学医学部泌尿器科において、1970年1月から1979年12月までの10年間に、単辜丸症11例、無辜丸症1例の計12例の辜丸欠損症を経験したので、若干の文献の考察を加えて報告する。

自験例の概略

自験12例の概略はTable 1, 2に示した。

1) 年齢

10歳未満9例、10歳代1例、20歳代1例、40歳代1例であり、その平均年齢は11.3歳であった。

2) 患側

単辜丸症11例のうち左側8例、右側3例であった。

3) 生下時体重

生下時体重では、症例6は2000gで未熟児であり、また症例8は妊娠8カ月目の早産であったが、両

者ともその後の發育は正常であった。他の10例は満期安産で、生下時体重に異常は認められなかった。

4) 尿中17-KS, 尿中17-OHCS

尿中17-KSは12例中7例に、また尿中17-OHCSは12例中6例に測定したが、全例正常範囲内であった。

5) HCG テスト

12例中2例にHCGテストを施行したが、いずれも無反応であった。

6) 妊娠中母親に対するホルモン剤投与の有無

4例はホルモン剤投与の有無は不明であったが、明らかにホルモン剤の投与を受けたと思われる例は認められなかった。

7) 尿路奇形

12例全例にIVPを施行したが、いずれも異常所見は認められなかった。

8) 精管および副辜丸の有無

単辜丸症11例のうちで、辜丸のみの欠損が3例、辜丸および副辜丸の欠損が5例、辜丸、副辜丸および精管がともに欠損していたものが3例であった。症例11は無辜丸症例であるが、両側とも辜丸および副辜丸の

Table 1

症 例	年 度	年 齢 (歳)	患 側	生 下 時 体 重 (g)	尿17 中K S (mg/day)	尿17 中O H C S (mg/day)
1	1970	5	左	2900	0.3	— *
2	1974	8	右	3000	0.3 ~ 0.5	2.0 ~ 3.4
3	1975	5	左	3000	0.2 ~ 0.3	2.5 ~ 4.0
4	"	5	左	3100	0.2 ~ 0.4	2.7 ~ 5.0
5	"	5	左	4000	—	—
6	1976	7	左	2000	0.2 ~ 0.3	2.3 ~ 2.9
7	"	29	右	不明	3.8 ~ 6.6	4.4 ~ 7.5
8	1977	49	右	8カ月の 早産	—	—
9	1978	3	左	3680	—	—
10	"	3	左	3400	—	—
11	1979	5	右左	3000	0.1	2.2 ~ 2.3
12	"	12	左	3350	—	—

* 施行せず

Table 2

症 例	H C G テ ス ト	妊 娠 中 の ホ ル モ ン 剤 投 与	I V P	外 性 器 異 常	精 管 の 有 無	副 睾 丸 の 有 無	対 側 睾 丸	そ の 他 検 査
1	—*	不明	正常	無	有	有	正常	
2	5000 u →反応なし	"	"	"	無	無	"	
3	—	無	"	"	有	無	"	
4	—	"	"	"	無	無	陰嚢 水腫(+)	
5	—	"	"	"	有	無	正常	
6	—	"	"	"	有	無	"	
7	—	不明	"	"	有	無	"	精液検査 精子数・ 運動率 とも正常
8	—	"	"	"	有	有	"	
9	4000 u →反応なし	無	"	"	無	無	"	
10	—	"	"	"	有	無	"	
11	—	"	"	"	有	無	欠損	
12	—	"	"	"	有	有	正常	

* 施行せず

欠損した例であった。

9) その他の合併症

症例4において、対側の陰嚢水腫が認められた。他の10例では対側辜丸に異常はなく、また外性器に異常が認められた症例はなかった。

10) 辜丸欠損症の年度別発生頻度

各年度における停留辜丸手術例数、および辜丸欠損症例数を Table 3 に示した。これによれば10年間の停留辜丸に対する手術は158例であり、うち12例 (7.6%) に辜丸欠損症が認められた。停留辜丸に対する手

Table 3

年度	停留辜丸手術例数	辜丸欠損症例数
1970	9	1
71	9	0
72	6	0
73	15	0
74	18	1
75	19	3
76	15	2
77	28	1
78	18	2
79	21	2
計	158	12 (7.6%)

術において辜丸欠損症が発見された割合は、1970年から1974年までの5年間は57例中2例 (3.5%) であったが、1975年から1979年までの5年間は101例中10例 (9.9%) であった。つぎに無辜丸症 (症例11) について報告する。

症 例

患者：5歳、男子。

初診：1979年3月24日。

主訴：両側陰嚢内容の欠如。

家族歴・既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：満期安産、生下時体重3000g。1歳検診時に両側陰嚢内容の欠如を指摘され、経過を観察していたが、陰嚢内容の下降が認められないため当科を受診した。

現症：陰茎は仮性包茎で、外尿道口は正常。両側陰嚢内容は欠如し、鼠径管内にも触知されなかった。

諸検査成績：血液化学検査、および尿検査では異常は認められなかった。染色体は46XY型であった。尿中ゴナドトロピン 6 m.u.u./day 以下、血中HCG 6.6 I.U./l、血中テストステロン 5 ng/dl。

X線学的検査：KUB, IVP, 逆行性尿道造影、および排尿時膀胱尿道造影で尿路系の異常は認められなかった。またトルコ鞍のX線検査でも異常は認められなかった。以上の所見より両側の腹部停留辜丸の疑いで、1979年4月11日、GOF全麻下に手術を施行した。

手術所見：内鼠径輪の上方、一部後腹膜腔まで検索したが、辜丸を確認できなかった。両側精管は外鼠径輪を通り、陰茎根部付近の陰嚢内までの走行が確認され、その先端に右側 10×5×3 mm、左側 7×4×3 mm 大の辜丸を思わせる弾性軟の組織が認められた。この一部を左右1か所ずつ生検し、左右の陰嚢内にそれぞれ固定した。精索は両側とも認められなかった。

病理組織所見：辜丸を思わせる組織は左右とも fibrous tissue で、辜丸および副辜丸組織は認められなかった。

術後経過：経過は順調で、1979年4月21日に退院した。

考 察

辜丸欠損症の報告例は最近増加しつつあるが、その理由として、造精機能の問題、辜丸腫瘍の発生率の問題などから、積極的な手術が行なわれるようになったことに一因しているものと考えられる。Borrow ら²⁾ は辜丸欠損症の頻度を調査し、単辜丸症は男子5000人に1人、無辜丸症は男子20000人に1人の割合でみられたと述べている。

Levitt ら³⁾ は手術による辜丸欠損症の診断について、精索の盲端が存在する場合は確定診断としてよいが、精管の盲端または副辜丸が存在して辜丸が明らかでない場合は、辜丸欠損症とは断定できず、後腹膜腔および腹腔内の検索が必要であると述べている。これに対して市川ら⁴⁾ は、辜丸が認められないで、副辜丸もしくは精管のみが陰嚢内に確認された場合には、内鼠径輪付近の検索が必要であるが、それでも辜丸が発見できない場合には、辜丸欠損症と診断してよいと述べている。同様に、石戸ら⁵⁾ は、理想的には後腹膜腔の検索が行なわれるべきであるが、実際には患者に小児が多いこと、手術侵襲の問題などから、内鼠径輪および精管、さらに精索血管の存在すべき部位の近傍にも辜丸が見い出せない時には、一部後腹膜腔までの検索に止めていると述べている。われわれの症例では、必ずしも全例に後腹膜腔までの広範囲な検索は行なわれていない。しかし臨床的には辜丸の検索には限度があり、今回の診断は市川ら、石戸らの報告に準じて行なった。

停留辜丸の手術時に辜丸欠損症が発見される割合に

について、Gross ら⁵⁾は停留辜丸手術1222例中37例(3.0%)に辜丸欠損症が認められたと報告している。一方、本邦における辜丸欠損症の報告は、停留辜丸手術の5~10%とするものが多く、欧米と比較してやや高率となっている¹⁾。最近、石戸ら¹⁾は岡山大学泌尿器科における35例の停留辜丸手術で、9例(25.7%)に辜丸欠損症が認められたと報告している。自験例では、最近10年間の停留辜丸手術158例のうちで、12例(7.6%)に辜丸欠損症が発見されたが、最近5年間に限れば、その発見率は9.9%であった(Table 3)。

単辜丸症における患側は、左側が多いことが知られている。本邦においては、吉本ら⁶⁾、石戸ら¹⁾の計130例の集計では、左側92例、右側38例で、その比は2.4:1であった。自験11例では左側8例、右側3例で、その比は2.7:1であった。

Grumbach⁷⁾は辜丸の發育障害を性腺發生障害と性腺發生異常という面から、つぎのように分類した。1) gonadal aplasia—critical stage 以前の性器の發生障害によるもので、Turner 症候群はこれに含まれる。2) agonadism—外陰部の發育が充分に行なわれる前に gonad が消失し、小さな phallus が存在するもの、3) congenital anorchia with pseudohermaphroditism—男性仮性半陰陽のことで、外陰部の形成が完結する前に gonad が消失したもの、4) congenital anorchia—外陰部まで完全に男性型になった後に、gonad の消失がおこったもので、両側の場合は類宦官症になる、5) retentio testis—自験11例目の無辜丸症は上記分類の4)に相当するものと考えられる。

辜丸欠損症の病因として、吉本ら⁶⁾は、1) 胎児の内分泌異常、2) 母体の内分泌異常、3) X線障害、4) 胎児の外傷、5) 流行性耳下腺炎、6) 梅毒、7) 循環障害、の7点を発症に關与しうる因子としてあげている。また Goldberg ら⁸⁾は、辜丸が下降する胎生期7~9か月頃に精索の捻転により、血流が途絶えると考えるのが原因として自然であろうと述べている。

井川ら⁹⁾は本症を副辜丸、および精管の有無によって、I~III型に分類した。それによると、I型は辜丸のみの欠損、II型は辜丸と副辜丸の欠損、III型はII型にさらに精管の欠損を伴うものである。これに準じて

分類すると、吉本らによる本邦99例の単辜丸症は、I型24例(24.2%)、II型49例(49.5%)、III型26例(26.3%)となるという⁶⁾。また自験11例の単辜丸症においては、I型3例(27.3%)、II型5例(45.4%)、III型3例(27.3%)となる。なお症例11は無辜丸症例であるが、両側とも井川らの分類のII型に相当した。

辜丸欠損症の合併症について、石戸ら¹⁾は本邦148例を集計した。それによると造精機能障害が8例(5.4%)と最も多く、以下対側停留辜丸6例(4.1%)、精囊欠損4例の順であった。自験例では、症例4に対側の陰囊水瘤が認められたが、理学的所見、IVP、排尿時膀胱尿道造影で異常が認められた症例はなかった。

結 語

金沢大学医学部泌尿器科において、最近10年間に経験した単辜丸11症例、無辜丸症1例の計12例の辜丸欠損症を報告するとともに、若干の文献的考察を加えた。

文 献

- 1) 石戸則孝・赤枝輝明・大橋輝久・松村陽右・大森弘之：西日泌尿，41：671~675，1979。
- 2) Borrow, M. and Gough, M. H.: Lancet, Feb., 14: 366, 1970.
- 3) Levitt, S. B., Kogan, S. J., Engel, R. M., Weiss, R. M., Martin, D. C. and Ehrlich, R. M.: J. Urol., 120: 515~520, 1978.
- 4) 市川篤二・熊本悦明：日泌尿会誌，52：453~460，1961。
- 5) Gross, R. E. and Jewett, T. C., Jr.: J.A.M.A., 160: 634~641, 1956.
- 6) 吉本 純・高田元敬・藤田幸利：西日泌尿，40：77~82，1978。
- 7) Grumbach, M. M.: Recent Prog. Hormone Res., 14: 255~324, 1958.
- 8) Goldberg, L. M., Skaist, L. B. and Morrow, J. W.: J. Urol., 111: 840~845, 1974.
- 9) 井川欣市・島村昭吾・安藤 徹：臨床皮泌，19：1317~1321, 1965.

(1980年6月12日受付)