

右交叉性睾丸転位に左睾丸腫瘍および 子宮・卵管をともなった1例

市立堺病院泌尿器科（部長：坂口 洋）

瀬 口 利 信

光 林 茂

坂 口 洋

市立堺病院臨床病理部（部長：花井 淳）

花 井 淳

TRANSVERSE ECTOPIA OF THE RIGHT TESTICLE AND TUMOR OF THE LEFT TESTICLE WITH IMMATURE UTERUS AND FALLOPIAN TUBES: REPORT OF A CASE

Toshinobu SEGUCHI, Shigeru MITSUBAYASHI and Hiroshi SAKAGUCHI

From the Department of Urology, Sakai Municipal Hospital

(Director: Dr. H. Sakaguchi)

Jun HANAI

From the Department of Clinical Pathology, Sakai Municipal Hospital

(Director: Dr. J. Hanai)

A case of transverse ectopia of the right testicle and the left testicular tumor with the immature uterus and the fallopian tubes is reported.

The patient, a 27-year-old married man, was admitted to our hospital with the suspicion of left testicular tumor and right undescended testicle. In his left scrotum, a double hen-egg-sized tumor was palpable and the right scrotum was empty. Exploration of the left inguinal canal disclosed double testicles with hernia uteri inguinalis. The right testicle showed transverse ectopia, and the histological finding of the left testicle was choriocarcinoma.

In our review of the Japanese literature, we discovered 67 reported cases of transverse testicular ectopia. 33 (49.3%) out of 67 cases had ~ uterus and 9 cases (13.4%) had testicular tumor.

Key words: Testicular tumor, Transverse testicular ectopia

は じ め に

交叉性睾丸転位は、患側の陰嚢に睾丸が無く、2つの睾丸が同一の鼠径管を通過して下降したもので、睾丸の先天性位置異常のなかでもきわめてまれなものである。本症の多くの例に、子宮や卵管の存在が認められ、その場合には、男性半陰陽のひとつとして、hernia uteri inguinalis,あるいは persistent Müllerian

duct syndromeなどと称されている。

今回、われわれは、子宮・卵管をともなった右交叉性睾丸転位に、左睾丸腫瘍の発生した1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：M.W. 27歳、男子

初診：1983年3月3日

主訴： 左陰嚢内容の腫大

家族歴： 特記すべきことなし

結婚歴： 結婚後、1年余りを経過したが、妻に妊娠歴がない。

既往歴： 1歳時、左鼠径ヘルニアの手術を受けている。

現病歴： 1983年1月始め、陰嚢内容の腫脹に気付いたが、そのまま放置していたところ、自発痛・圧痛が徐々に出現してきたため、2月末に、某院を受診し、当科へ紹介された。

現症： 身長 168 cm, 体重 68 kg, 体格、栄養中等度、胸・腹部に異常を認めず、左鼠径部に手術痕あり、陰嚢内には、鶏卵の約2倍大の腫瘍をただ1個触知し、これに連なるように、左鼠径部には精索様の索状物が触知された。腫瘍は、弾性硬で、表面は顆粒状、軽度圧痛がみられ、透光性試験は陰性、陰嚢皮膚に発赤などの炎症所見はなかった。いっぽう、右鼠径部には、睾丸や精索をまったく触れなかった。

以上の所見から、左睾丸腫瘍ならびに右停留睾丸の疑いで、即日、緊急手術のため、入院した。

入院時検査所見・胸部レ線：入院時の胸部レ線で、すでに両肺野に多発転移を認めた。腫瘍マーカー；尿中 HCG 40,000 IU/l, 血清 HCG 13,000 mIU/ml, 血清 α -FP 45.4 ng/ml, 血清 CEA 1 以下 ng/ml. 赤沈値；1時間値 88 mm, 2時間値 98 mm. 血液像；赤血球数 $431 \times 10^4 / \text{mm}^3$, Hb 12.8 g/dl, Ht 39.0%, 白血球数 $7,400 / \text{mm}^3$ (分画に異常なし), 粒球数 $33.4 \times 10^4 / \text{mm}^3$. 血液化学；BUN 9.3 mg/dl, Cr 1.1 mg/dl, Na 141 mEq/l, K 4.1 mEq/l, Cl 98 mEq/l, Ca 8.6 mg/dl, Pi 5.9 mg/dl, 尿酸 8.6 mg/dl, GOT 33 Ku, GPT 18 Ku, γ -GTP 51.7 mU/ml, Al-P 15.1 K-Au, LDH 1,725 Wro. u (LDH アイソザイム I II III IV V = 51 : 38 : 8 2 3), LAP 131 G-Ru, ch-E 0.77 Δ pH, chol. 143 mg/dl, 血清総蛋白 7.4 g/dl, Alb. 3.7 g/dl, 総ビリルビン値 0.86 mg/dl, 直接ビリルビン値 0.34 mg/dl. 止血機能；出血時間 3 分, プロトロンビン時間 12.9 秒, fibrinogen 530 mg/dl. Wa-R (-), HB-Ag (-), HB-Ab (-). 尿所見；黄色透明, pH 7.0, 蛋白 (-), 糖 (-), 潜血 (-), ウロビリノーゲン正常, 尿沈渣に異常なし。

手術所見 (Fig. 1): 腰麻麻酔下で、左鼠径部に斜切開を加え、直径約 1.5 cm の左精索と思われる索状物と、それに併走した直径約 5 mm の2番目の索状物を認めた。前者は棍棒状で硬く、その表面を樹状に静脈叢が取り巻いていた。これら2本の索状物をそれぞれネラトンで強く結紮したうえで、陰嚢内容を創部から

脱転したところ、1番目の索状物の下に直径約 1.2 cm ほどの第3の索状物を認めた。そこで、創部と腫瘍とを充分隔離したうえで、睾丸鞘膜を開いたところ、なかには、第3の索状物に連なる腫瘍化した睾丸と、第2の索状物に連なる萎縮傾向の強いもうひとつの睾丸がみられ、(鞘膜内で、腫瘍は足側に、もう1方の睾丸は頭側に、並ぶように収納されていた)、当初左精索と考えた第1の索状物は、睾丸鞘膜の外に付着し、終っていた。そこで、3本の索状物を、左内鼠径輪近傍でそれぞれ結紮離断し、陰嚢内容を一塊として摘除した (Fig. 2)。なお、萎縮睾丸の精索は、鼠径管内で、右側に向かって走行していた。

病理組織学的所見： Fig. 3 は、腫瘍化した睾丸の組織像である。核小体のみられる大型異形細胞が、

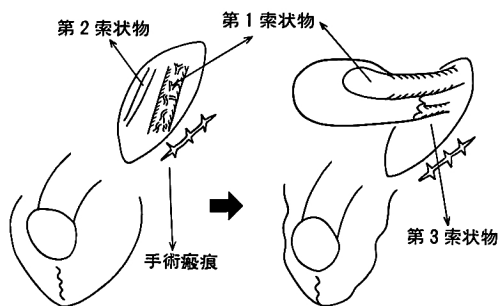


Fig. 1. 手術所見

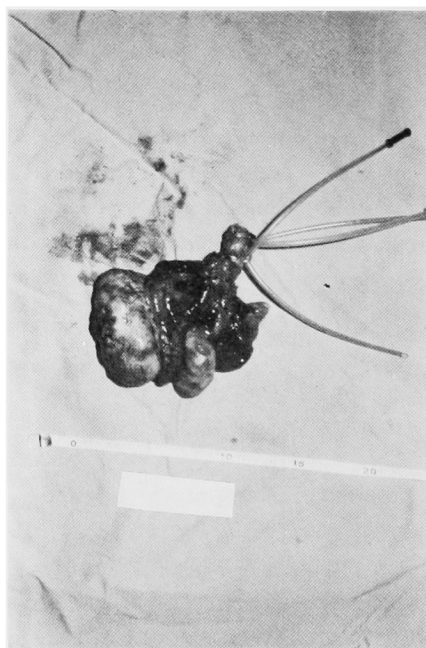
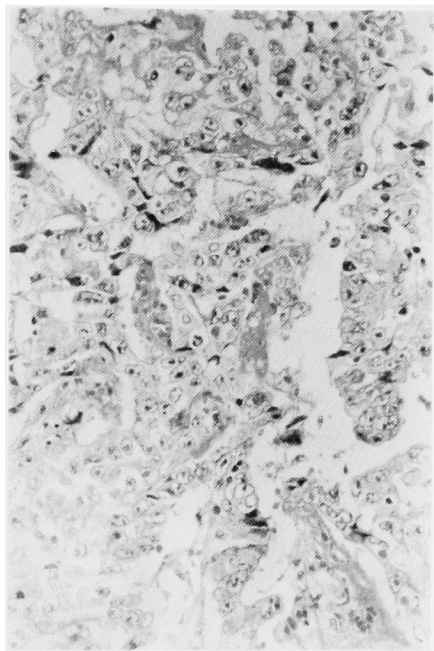
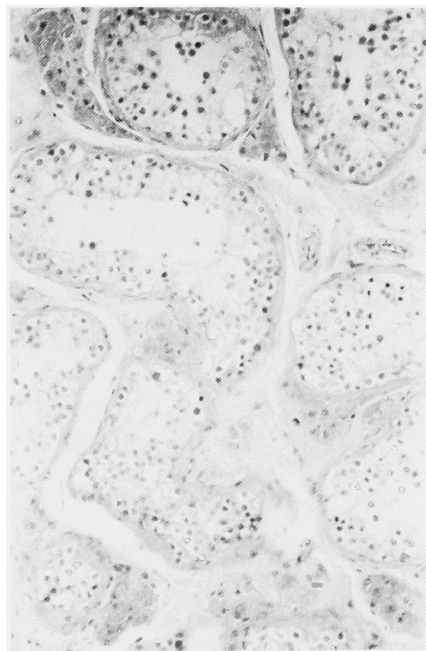
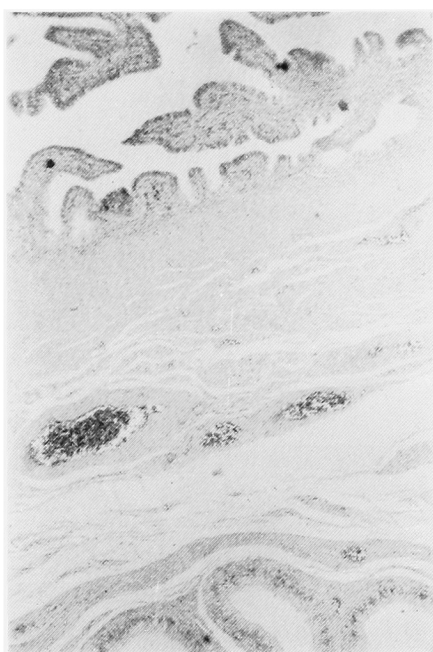


Fig. 2

Fig. 3. $\times 200$ Fig. 4. $\times 100$ Fig. 5. $\times 40$ Fig. 6. $\times 40$

大半 solid に配列し、増生しており、trophoblastic な大型核細胞も散見され、choriocarcinoma の組織像といえる。ただし、写真にないごく一部の領域には、Schiller-Duval body がみられ、 α -FP の異常値に反映されるような yolk sac tumor の element も、

わずかに含まれていると考えられる。

Fig. 4 は、非腫瘍側の睾丸組織像である。睾丸は全体に軽度萎縮状で、精子形成は、ごく一部の精細管に認められるのみである。間質は、ところどころ線維性で、Leydig cells の結節がみられる。

Fig. 5 は、第1番目の索状物の組織像である。写真右上の内腔に面して、子宮内膜組織がみられ、いわゆる子宮内膜腺の構造と分布を呈し、その間質細胞も、内膜特有の配列を示している。写真左下には、myometrium に当る平滑筋を認める。Fig. 6 の上半には、繊毛円柱上皮が乳頭状を呈した卵管組織があり、写真のすぐ下半に ductus epididymidis も認められる。

以上の所見から、本症例は、子宮・卵管をともなった右交叉性睾丸転位に、左睾丸腫瘍が発生したものと診断された。

なお、術後、尿道膀胱造影を施行したが、異常所見は得られず、また、白血球による染色体検査では、46-XY であった。

本症例に対しては、術後11日目から、3～4週に1クルールの割で、Einhorn の regimen に準じた化学療法 (cis-DDP, VBL, PEP, 3者併用) を4クルール施行、いったん部分寛解を得て退院し、外来で補充療法をおこなっていたが、再発をきたし、現在、再入院のうへ、VP-16 を含めた化学療法を追加中である。

考 察

交叉性睾丸転位は、1912年、本邦での第1例目にあたる岩崎らの報告例¹⁾以来、さまざまな疾患名 (睾丸変位、睾丸横変位、横性睾丸転位、睾丸横位変位、睾丸横転位、睾丸交叉性偏位、など) で報告され、福田ら (1961) の報告例²⁾にいたって、ようやく今日の交叉性睾丸転位の名称が、使用され、定着するようになった。その定義は、‘一側睾丸が正中線を越えて他側にいたり、反対側の鼠径輪を通して下降し、同側の陰嚢に、2つの睾丸が存在する場合³⁾’とされているが、

過去の集計 (小寺ら⁴⁾までの56例) には、交叉性睾丸が、反対側陰嚢内に下降せず、反対側の腹腔内や、鼠径管に停留した状態である症例も含めており、今回のわれわれの集計も、これに従った。結果は、Table 1 の通り、67例を数え、このうち9例 (13.4%) に、睾丸腫瘍の合併を認めた (Table 2)。

年齢分布は、最低3ヵ月から最高67歳まで、0～9歳; 24例、10～14歳; 7例、15～19歳; 8例、20～29歳; 15例、30～39歳; 10例、40歳以上; 3例で、15～19歳の8例を間に、思春期前と成人とが、それぞれ31例、28例を占めた。

患側 (睾丸欠除側) は、右; 37例、左; 29例、不詳; 1例で、とくに左右差はみられなかった。

染色体を検索した症例は19例で、記載は、いずれも46XY型、もしくはsex chromatin 陰性であった。

内分泌学的検査のおこなわれた15例のうち、あきらかな異常値を呈した症例はなかった。

合併症としては、67例中、鼠径ヘルニア38例 (56.7%)、女性性器36例 (53.7%)、陰嚢水腫8例 (11.9%)、尿道下裂3例 (4.5%)、副睾丸結核2例 (3.0%)、以下、発育遅延、重複腎盂尿管、両側重複精管、腎結核、睾丸性女性化症候群、肺静脈還流異常と心房中隔欠損の合併が、各1例 (1.5%) であった。なお、鼠径ヘルニアの手術中に、偶然、子宮構造を発見し、診断される症例の多いことから、子宮合併例を、とくにhernia uteri inguinalis と称し、33例 (49.3%) が、これに該当した。詳細には、女性性器の合併した36例の内訳は、①子宮のみ; 18/67 (26.9%)、②子宮・卵管; 12/67 (17.9%) ③子宮・卵管・腔; 2/67 (3.0%)、④子宮・腔; 1/67 (1.5%)、⑤卵管のみ; 1/67 (1.5%)、⑥腔のみ; 2/67 (3.0%) であった。

Table 1. 本邦の交叉性睾丸転位例 (小寺⁴⁾以降の報告例)

No.	報告者	年齢	患側	合併症	女性性器	治療	発表誌
57	西本	31	R	左鼠径ヘルニア	子宮・腔	子宮・腔・右睾丸の摘除	西日泌尿, 42: 1057, 1980
58	松屋	6	L	心房中隔欠損 肺静脈還流異常	(一)	固定	日泌尿会誌, 71: 992, 1980
59	柳沢	25	R	混合腫瘍 (睾丸)	幼若子宮・卵管	腫瘍 (右睾丸) の摘除	泌尿紀要, 27: 793, 1981
60	三浦 高橋	10M	R	左鼠径ヘルニア	(一)	固定	日泌尿会誌, 73: 824, 1982 聖マリアンナ医大誌, 10: 398, 1982
61	佐久間	2	R	左鼠径ヘルニア	(一)	固定	日泌尿会誌, 73: 1357, 1982
62	養田	31	L	右鼠径ヘルニア	子宮		西日泌尿, 44: 1533, 1982
63	平川	2	R		(一)	固定	日泌尿会誌, 73: 1636, 1982
64	〃	3M	R	左鼠径ヘルニア		固定	〃
65	永田	4	L	両側停留睾丸		固定	〃
66	田谷	34	L		(一)	固定	日泌尿会誌, 74: 147, 1983
67	自験例	27	R	左鼠径ヘルニア 睾丸腫瘍	子宮・卵管	両側除辜	

Table 2. 本邦での睾丸腫瘍を合併した交叉性睾丸転位例

No.	年度	報告者	年齢	治療	腫瘍組織	女性性器	交叉側	腫瘍側
1.	1935	井上ほか	25	両側除睾	混合腫瘍	子宮	L	L
2.	1960	古沢	31	片側除睾	seminoma		L	R
3.	1971	大北ほか	30	片側除睾	seminoma	子宮	R	?
4.	1973	浅野ほか	33	片側除睾	seminoma		R	L
5.	1974	木下ほか	44	両側除睾	seminoma	子宮	L	L?
6.	1976	沢木ほか	32	片側除睾	seminoma	子宮	R	L?
7.	1981	小寺ほか	37	両側除睾	seminoma	子宮	L	R
8.	1981	柳沢ほか	25	片側除睾	(embryonal ca. seminoma)	子宮・卵管	R	R
9.	1983	自験例	27	両側除睾	chorio ca.	子宮・卵管	R	L

睾丸組織像を検索した症例は35例で、このうち正常組織あるいは年齢相応の所見を呈したものが、20歳以上；3/15 (20.0%)、15～19歳；2/6 (33.3%)、0～14歳；10/14 (71.4%)、計15/35 (42.9%)であった。すなわち、思春期以前（0～14歳）には、多くの症例（71.4%）が、年齢相応の睾丸の発育を呈していながら、成人（20歳以上）になるにしたがい、萎縮傾向を呈するものと考えられた⁹⁾。なお、実子をもうけた症例は、67例中3例あり、このうち2例の睾丸組織像は正常であった（残り1例の組織像は不明）。したがって、本症での不妊症は、congenitalなものではなく、思春期以後の睾丸の発育環境に問題があると推定され⁹⁾、小児期に発見しえた交叉性睾丸転位については、是非とも交叉睾丸の正常位置への固定が必要と考えられる。

交叉性睾丸転位の成因については、従来より、①左右の Wolff 管が睾丸下降前に1本に癒合したため、精管下部が1本になり、両側睾丸が分離しないままに一侧に下降する⁹⁾、②Müller 氏管の遺残・発育により、一侧に Lig. Latum が形成され、その側への睾丸下降を阻害するとともに、Müller 氏管と一体となって反対側の睾丸下降に引っ張られる⁷⁾、③睾丸導体の異常（萎縮・拘縮など）に起因する⁹⁾、などの仮説があるが、いずれもすべての症例を説明するには不十分である。Thevasthan は、本症の成因を、精管の癒合によるものと Müller 氏管の遺残によるものとの2群に分けたうえで、両者のいずれの場合にせよ、両睾丸が近接した位置をとるために“睾丸下降に先立って、同じ鞘膜内に両睾丸が包まれてしまう”ことが原因になると述べている⁹⁾。なお、本疾患の約半数（49.3

%）に見られた子宮構造の合併（すなわち persistent Müllerian duct syndrome）については、Müllerian inhibiting substance（以下、m.i.s. と略す）の障害が原因と考えられている¹⁰⁾。すなわち、男性への分化を支配する2つのホルモン、androgen (virilization を誘導) と m.i.s. (Müller 氏管の発育を阻止) のうち、後者が障害されたため、肉体的にはほぼ正常な男性となるにもかかわらず、子宮構造の遺残と、それに続発した睾丸転位が起るものと考えられる。その遺伝形式については、兄弟間の発生が少なからず見受けられること¹¹⁻¹⁴⁾、患者の母系のおじに発生がみられないこと¹¹⁾などから、常染色体性劣性遺伝の可能性が推定されている¹²⁾。

交叉性睾丸転位に睾丸腫瘍の合併した症例は、本邦では自験例を含め9例であった (Table 2)。従来から、pure gonadal dysgenesis あるいは mixed gonadal dysgenesis などのY染色体を有する半陰陽では、停留した性腺に高頻度の腫瘍化の起ることが、報告されており¹⁵⁻¹⁷⁾、そのほとんどが seminoma (dysgerminoma) あるいは gonadoblastoma である。交叉性睾丸転位での睾丸腫瘍の発生についても、これとなんらかの関係があるものと推定される^{5,11)}が、Table 2 の9例の内訳は、seminoma 6例、choriocarcinoma 1例、embryonal ca. & seminoma 1例、混合腫瘍（詳細不明）1例で、いわゆる gonadoblastoma はなかった。さらに9例中、停留睾丸の合併は2例に過ぎず（症例2と8で、前者は非停留側が、後者は停留側が腫瘍化）、交叉している睾丸を同定しうる6例のうち、交叉側睾丸の腫瘍化は2例（33.3%）に過ぎなかった。したがって、現時点で、

交叉性睾丸転位と睾丸腫瘍発生との間には、積極的な因果関係は見いだせない。

本疾患の治療としては、合併した女性性器（すなわち子宮）を切除し、睾丸を本来の側の陰嚢内へ固定することが、一般におこなわれている。その固定法には、①睾丸隔膜を通す方法（transseptal orchiopexy）、②腹直筋鞘と皮下の間を通す方法、③腹直筋下を通す方法、④膀胱後部を通す方法、などが症例に応じて用いられている。前述のごとく、本疾患では不妊症が必発ではなく、睾丸・精管をできるかぎり損傷せず、本来の位置に固定することが望ましい^{11,12)}。しかし、精管が子宮に併走・癒着していることが多いために、子宮を切除しようとすれば、精管の損傷を避けることが困難である。さらに、子宮を放置しても、その存在が尿路感染の誘因になったという報告はなく、子宮悪性化の報告例も M.G.D. の1例に過ぎない¹³⁾。したがって、睾丸固定の際、無理に子宮を切除することは、むしろ不適切と考えられる。

ま と め

右交叉性睾丸転位に、左睾丸腫瘍（絨毛上皮癌）と子宮・卵管を合併した27歳の症例を報告した。

本邦での交叉性睾丸転位症は、自験例を含め67例あり、うち33例が子宮をとらない、9例が睾丸腫瘍を合併した。腫瘍を合併しない症例の治療には、交叉側睾丸の固定が行なわれるが、その際、子宮切除は不必要と考えられる。

本論文の要旨は、第104回日本泌尿器科学会関西地方会で発表した。

文 献

- 1) 岩崎衛二：睾丸転位ノ一奇例。中外医事新報 770 : 545~548, 1912
- 2) 福田勝次・板谷博之・堀口泰弘・寺西輝高・山本治：男性子宮を伴った交叉性睾丸転位の一例。日本外科宝函 30 : 411~417, 1961
- 3) 石神襄次：日本泌尿器科全書第6巻，p 22，金原出版，東京，1960
- 4) 小寺重行・大石幸彦・木戸 晃・岡崎武二郎・柳沢宗利・吉田正林・大西哲郎・町田豊平：左交叉性睾丸転位に右睾丸腫瘍および子宮を伴った1例 泌尿紀要 27 : 529~535, 1981
- 5) Pappis C, Constantinides C, Chiotis D and Dacou-Voutetakis C : Persistent Müllerian duct structures in cryptorchid male infants: Surgical Dilemmas. J Petiatr Surg 14: 128~131, 1979
- 6) Gupta RL and Das P: Ectopia testis transversa. J Ind Med Assoc 35: 547~549, 1960
- 7) 駒瀬元治・晝間 哲：睾丸の交叉性偏位を伴なう男性仮性半陰陽。日泌尿会誌 48 : 660~664, 1957
- 8) Hunt RW: Ectopic testis: Report of a case of bilateral ectopia testis pelvis and its surgical correction. J Urol 44: 325~332, 1940
- 9) Thevasthan CD: Transverse ectopia of the testis. Aust NZJ Surg 37: 93~102, 1967
- 10) Josso N : Interspecific character of the Müllerian inhibiting substance : Action of the human fetal testis, ovary and adrenal on the fetal rat Müllerian duct in organ culture. J Clin Endocrinol Metab 32: 404~409, 1971
- 11) Sloan WR and Walsh PC: Familial persistent Müllerian duct syndrome. J Urol 115: 459~461, 1976
- 12) Weiss EB, Kiefer JH, Rowlett UF and Rosenthal IM : Persistent Müllerian duct syndrome in male identical twins. Pediatrics 61: 797~800, 1978
- 13) 親松常男・堀内誠三：家族的に起った子宮を伴なう交叉性睾丸転位症。日泌尿会誌 69 : 526, 1978
- 14) 平川真治・後藤 甫・石田昭玲・竹中生昌：睾丸転位の3例。日泌尿会誌 73 : 1636~1637, 1982
- 15) Scully RE: Gonadoblastoma: A review of 74 cases. Cancer 25: 1340~1356, 1970
- 16) Davidoff F and Federman DD: Mixed gonadal dysgenesis. Pediatrics 52: 725~742, 1973
- 17) Manuel M, Katayama KP and Jones HW: The age of occurrence of gonadal tumors in intersex patients with a Y chromosome. Am J Obstet Gynecol 124: 293~300, 1976
- 18) Lewis FJW, Mitchell JP and Foss GL : XY/XO Mosaicism. Lancet 1: 221~222, 1963 (1984年7月5日受付)