

精 管 開 口 異 常

横須賀共済病院泌尿器科

三 浦 猛・里 見 佳 昭

ECTOPIC VAS DEFERENS

Takeshi MIURA and Yoshiaki SATOMI

From the Department of Urology, Yokosuka Kyosai Hospital, Yokosuka, Japan.

A case of ureteral opening of bilateral vas deferens was presented. He was admitted to the Yokosuka Kyosai Hospital on September 26, 1978 with scrotal swelling and high fever.

An excretory urogram revealed a horseshoe kidney and marked hydroureters and a voiding cystourethrogram revealed bilateral vesicoureteral reflux. Next a seminal vesiculography was done, because there was no signs of pregnancy during the 9 years of married life and he was unable to produce emission of semen. The seminal vesiculogram revealed right vas deferens opened into the right lower ureter and left opened into the left mid ureter. The voided urine showed small number of spermatozoa.

Seitzman et al first described on ectopic vas deferens in 1960. 21 cases of ectopic vas deferens including our case are reviewed and the characteristics and the embryological consideration are discussed.

精管開口異常は稀な奇形で、1960年 Seitzman ら¹⁾が初めて報告して以来20例を数えるにすぎず、本邦では1972年古屋²⁾が右盲端尿管に開口した1症例を報告しているのみである。最近われわれは、急性副睾丸炎、不妊症を主訴とした両側精管の尿管への開口異常症例を経験したので報告するとともに、文献的考察および発生学的検討を加えた。

症 例

患者：32歳 男子

主訴：左陰嚢部腫脹・不妊

初診：1978年9月26日

現病歴：1978年9月22日ごろより左鼠径部痛、残尿感があり、9月25日ごろより左陰嚢部の腫脹・圧痛出現したため、9月26日当科受診した。

既往歴：19歳の時虫垂切除。9年前に結婚したが子供にめぐまれていない。

家族歴：特記すべきことなし。

現症：胸部、腹部とも理学的所見に異常を認めない。左副睾丸に一致して圧痛・腫脹を認めるも、陰茎

・恥毛など外陰部に異常を認めない。

検査所見：血圧 150/110 mmHg. 胸部 X-P, ECG に異常を認めない。尿所見：pH 6, 蛋白 (+), 糖 (-)。尿沈渣, 赤血球 20/HPF, 白血球 多数 / HPF, 細菌 (+), 精子 (+), 血液一般：赤血球数 $529 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hg 12.7 g/dl, Hct 37.8%, 白血球数 $16100/\text{mm}^3$, 血小板数 $25.5 \times 10^4/\text{mm}^3$, 血液生化学：T. P. 7.5 g/dl, A/G 1.64, GOT 68 Unit, GPT 128 Unit, ALP 11 Unit, LDH 209 IU/ml, BUN 11 mg/dl, creatinine 0.4 mg/dl, Na 137 mEq/L, K 4.5 mEq/L, Cl 95.5 mEq/L, 血糖 101 mg/dl, CRP 5+, 赤沈 1時間値 26mm, 2時間値 51 mm, Ccrea 127 L/day, LH 11.7 $\mu\text{U}/\text{ml}$, FSH 7.1 $\mu\text{U}/\text{ml}$, テストステロン 475 ng/dl. 染色体検査：46 XY. X線所見：腎尿管膀胱部単純撮影 (KUB) にて異常石灰化および骨の奇形を認めない。排泄性腎盂造影 (IVP) にて馬蹄鉄腎、両側の水尿管、重複腎盂尿管を認めた (Fig. 1)。さらに排尿時膀胱造影にて両側の膀胱尿管逆流現象 (VUR) を認めた (Fig. 2)。血管造影は施行しなかった。

治療経過：抗生剤投与および局所冷却により3日目



Fig. 1. Intravenous pyelogram reveals horseshoe kidney, hydronephrosis and rt. double collecting system.



Fig. 2. Voiding cystogram shows massive vesicoureteral reflux and marked hydronephrosis.

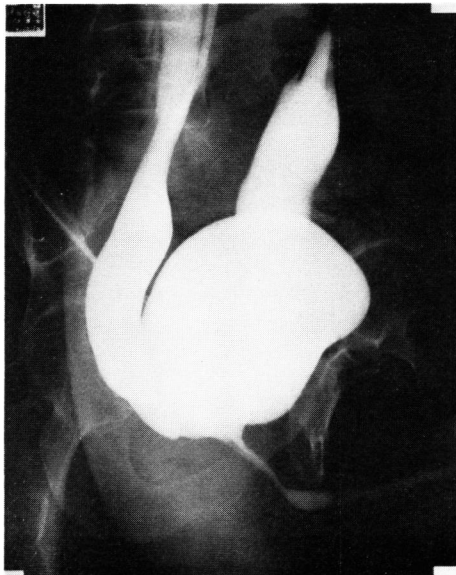


Fig. 3. Lateral view of voiding cystourethrogram reveals massive vesicoureteral reflux and marked hydronephrosis.



Fig. 4. Seminal vesiculogram: Rt. vas deferens with vestigial ampulla opens to rt. lower ureter. Lt. vas deferens opens to lt. midureter.

に下熱し、陰囊の発赤、腫脹も軽減した。患者は9年前に結婚したが子供にめぐまれていないため、不妊症の検査として精液検査を施行したが射精不能で検査で

きなかった。そのため精嚢腺造影を施行した(Fig. 3)。その結果左精管は左尿管中部に、右精管は癒着化した膨大部を認めたあと右尿管下端に開口していた。造影

Table 1. Cases of ectopic vas deferens

No.	Reference	Age (yr)	Side	Site of vas insertion	Ureteral orifice	VUR	Kidney	Seminal vesicle	Verumon-tanum	Imperforate anus	Other anomalies	Acute epididymitis
1	Seitzman et al. ¹⁾	11	Rt.	Lower ureter	G	None	Hydronephrosis	None	Yes	Yes	None	Yes
2	Alfert et al. ²⁾	7	Rt.	Lower ureter	A	None	Normal	None	*	None	Bil.-undesended testis and hypospadias	None
3	Furuya ³⁾	74	Rt.	Mid ureter	A	Yes	Agenesis	None	*	None	None	Yes
4	Tejmarava et al. ⁴⁾	30	Lt.	Bladder	A	*	Agenesis	*	*	None	None	None
5	Borger et al. ⁵⁾	New-born	Rt.	Lower ureter	*	Yes	None functioning kidney	*	*	Yes	None	None
6		New-born	Rt.	Lower ureter	*	Yes	Hypofunction	*	*	Yes	None	None
7	Redman et al. ⁶⁾	13	Rt. Lt.	Lower ureter Lower ureter	B B	Yes Yes	Normal Normal	Vestigial Vestigial	*	None	None	None
8	Reisman ⁷⁾	13	Rt.	Bladder	A	None	Normal	Yes	Yes	None	None	Yes
9	Boles et al. ⁸⁾	New-born	Rt.	Mid ureter	Dome of Bladder	Yes	Dysplastic kidney	None	*	Yes	None	Yes
10		2	Rt.	Lower ureter	*	Yes	Hydronephrosis	None	*	Yes	None	Yes
11	Gibbons et al. ⁹⁾	New-born	Rt. Lt.	Bladder Bladder	B B	None None	Normal Normal	None None	Yes	Yes	Sacral dysgenesis	None
12		1	Lt.	Bladder	A	Yes	Normal	None	Yes	None	Post-laryngeal cleft Rt. ectopic kidney	None
13	Schwartz et al. ¹⁰⁾	New-born	Rt.	Upper ureter	A	None	Normal	None	*	Yes	None	None
14		New-born	Lt.	Lower ureter	A	None	Multicystic kidney	None	*	Yes	None	None
15		New-born	Rt.	Lower ureter	G	Yes	Hydronephrosis	None	Yes	None	Tracheoesophageal fistula	None
16		New-born	Rt.	Upper ureter	G	Yes	Hypoplastic kidney	None	Yes	None	Tracheoesophageal fistula	None
17		New-born	Lt.	Lower ureter	F	Yes	Hydronephrosis	None	Yes	None	Urethral deformity	None
18		New-born	Rt.	Lower ureter	A	*	Hypoplastic kidney	None	*	Yes	Omphalocele	None
19		New-born	Rt.	Upper ureter	F	None	Hypoplastic kidney	None	*	Yes	None	None
20		New-born	Rt.	Lower ureter	G	Yes	Dysplastic kidney	None	*	Yes	None	None
21	Present report	31	Rt. Lt.	Bladder Bladder	(A) (A)	*	Horseshoe kidney	Yes	*	Yes	Congenital heart disease	None
			Rt. Lt.	Lower ureter Mid ureter	G F	Yes Yes	Horseshoe kidney	None	Yes	None	None	Yes

* unknown

では両側とも精囊腺を認めなかった。内視鏡検査では、精丘は認めるが、射精管口は認められず、尿管口は左右とも膀胱頸部に開口し幅広い slit 状を呈していた。膀胱三角部の發育はほとんど認められなかった。

患者は現在外来通院中で、精子の採取法など不妊症の治療を検討中である。

考 察

精管開口異常は稀な奇形で、1960年 Seitzman ら¹⁾が初めて報告して以来、外国症例を含め著者の集計した症例は、本症例を含めた21例¹⁻¹⁰⁾にすぎない (Table 1)。

年齢分布は新生児より76歳にまで及ぶが、約半数の11例は新生児期に見つかっている。これは鎖肛をはじめとする重篤な消化器および泌尿器系統の奇形を合併しているためである。

患側は両側例が自験例を含めて6例、片側例が15例である。片側例では右側が13例、左側が2例と圧倒的に右側に発生頻度が高いが、その原因は不明である。

異所性開口部位は、膀胱部開口 7精管、下部尿管開口 14精管、中部～上部尿管開口 6精管である。また精管の異所性開口している尿管の12尿管 (70%)に尿管の異所開口を認め、15尿管に VUR を認めている。腎の異常は16例に認められており、多くは無形成腎～形成不全腎であるが、自験例を含め馬蹄鉄腎2例¹⁰⁾、多囊腎1例¹⁰⁾を認めている。

精囊腺は、精管の尿管開口例では下部尿管開口の1例に癒着化した精囊腺を認めている⁶⁾のみで他の症例では認められず、精管の膀胱開口の症例では2例^{7,9)}に精囊腺を認めている。自験例でも精囊腺造影上右尿管下端に開口している精管に癒着化した膨大部らしきものを認めるのみで、精囊腺は認められない。

内視鏡上精丘は記載のあった7例すべてに認めており、この奇形が尿生殖洞およびウォルフ氏管の発生分化に係るもので、ミューラー氏管とは関係ないことを示している。

合併奇形では、腎の奇形以外には鎖肛あるいは直腸尿道瘻を11例 (52%) に認め尿生殖洞の分化の異常を伴うことを示している。そのほか停留辜丸²⁾、尿道下裂²⁾、二重尿道、仙骨形成異常⁹⁾、食道気管支瘻¹⁰⁾があり、新生児例の多くはこれらの奇形の治療中あるいは剖検時に見つかっている。

症状：重篤な合併奇形を伴わない症例では副辜丸炎、陰囊膿瘍あるいは排尿時陰囊腫脹が主な症状で、6例に認められた。自験例のように成人の両側精管の

開口異常では不妊症の検査で見つけられることがある。

診断：鎖肛をはじめとする消化器あるいは他の奇形の治療中偶然見つかったものを除くと、IVPやCGにて精管への造影剤の逆流を認めて診断される。精囊腺

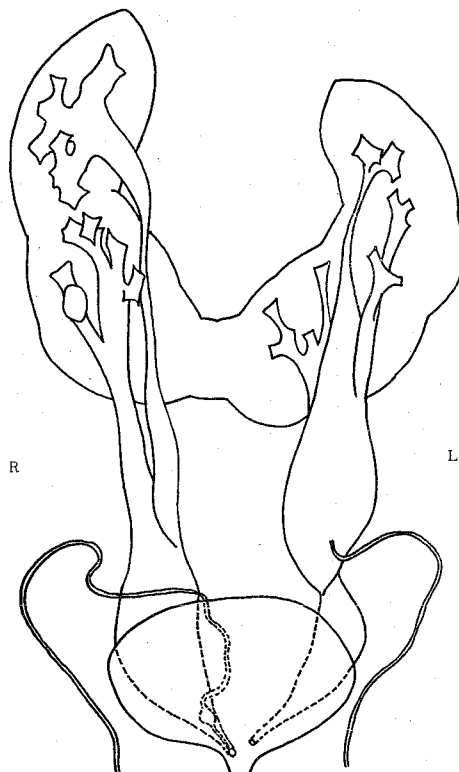


Fig. 5. Schematic representation of seminal vesiculogram and voiding cystogram.

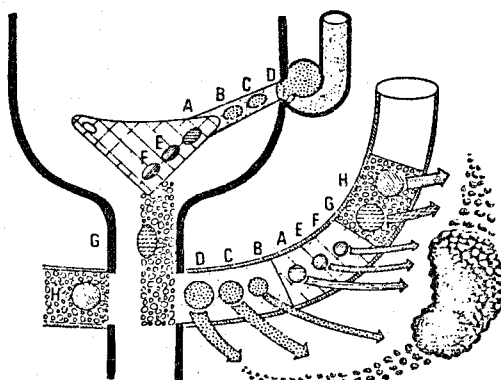


Fig. 6. Relationship of orifice zones in bladder and urethra and points of origine from Wolffian duct is shown. (Mackie, G. G, et al.)

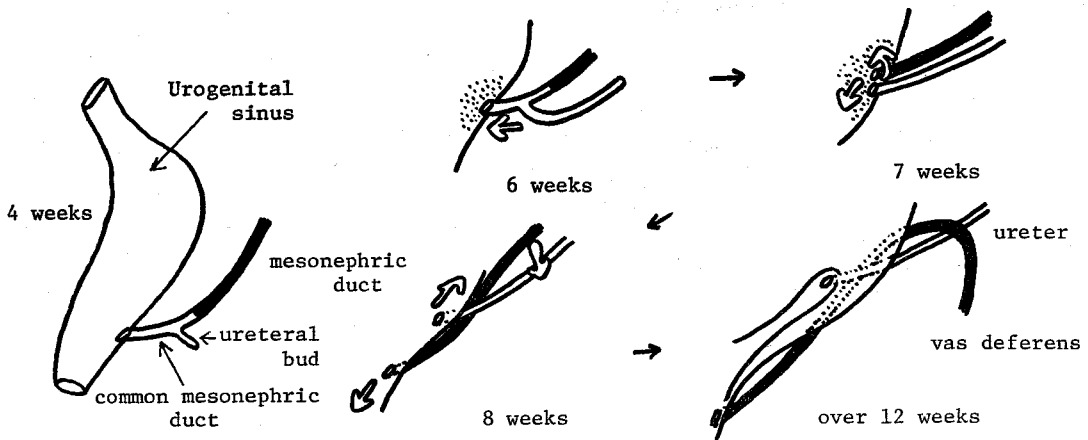


Fig. 7. The development of the ureteral bud from the mesonephric duct and their relationship to the urogenital sinus. The ureteral bud appears at the fourth week. The mesonephric duct distal to this ureteral bud will be gradually absorbed into the urogenitalsinus, resulting in separate endings for the ureter and the mesonephric duct. (Tanagho, E. A.)

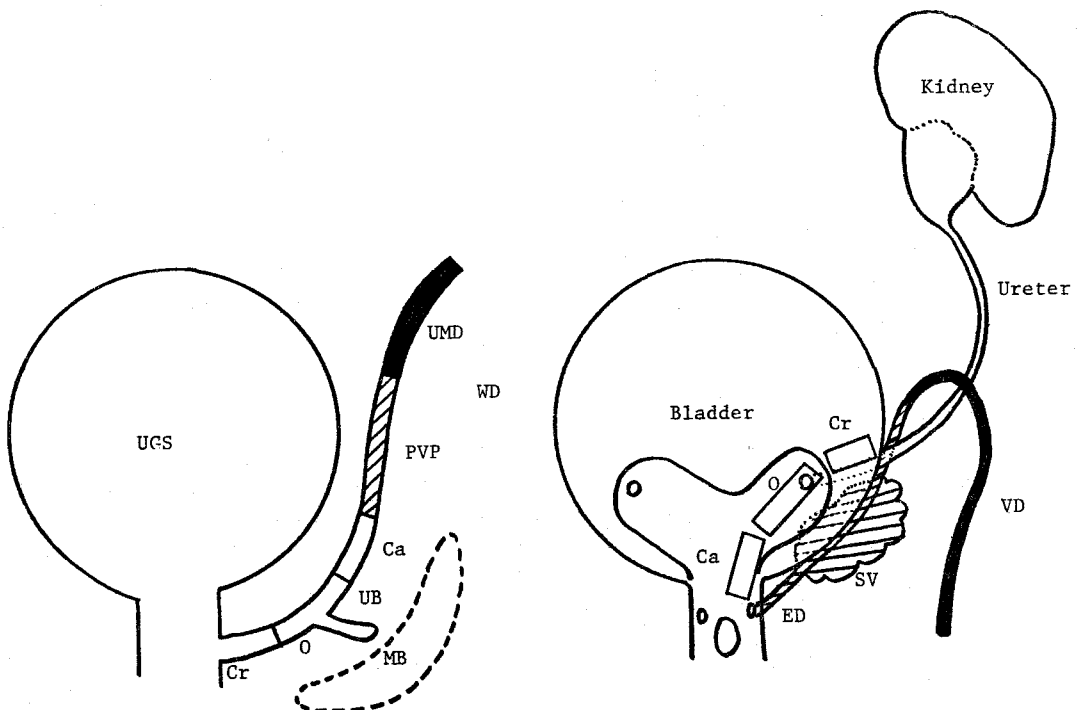


Fig. 8. Wolffian duct(WD) is comprised of 3 basic segments; Upper mesonephric duct(UMD) normally become distal vas deference(VD) and epididymis, proximal vas precursor(PVP) normally become juxtaurethral vas, ejaculatory duct(ED) and seminal vesicle(SV). Common mesonephric duct(CMD) which is trigonal precursor separate three ureterabudding zone. UB, ueteral bud. MB, metanephric blastema. (Gibbons, M. D. et al.)

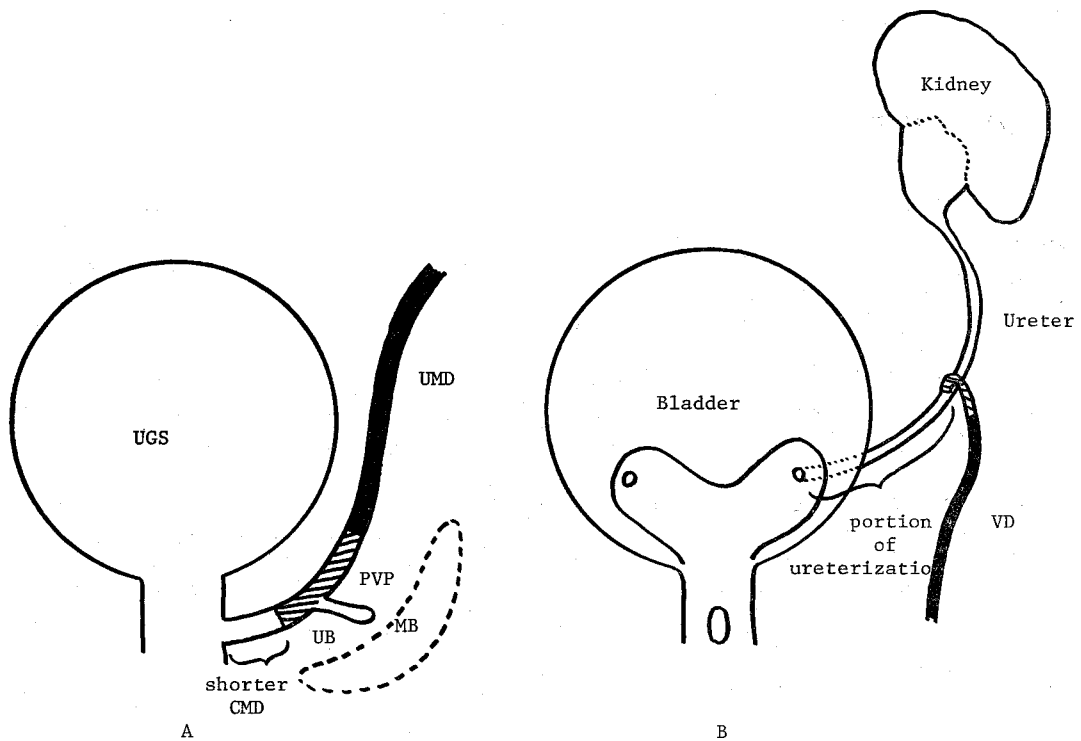


Fig. 9. A, shorter common mesonephric duct (CMD) and ureteral bud (UB) arises from the proximal vas precursor (PVP).
B, a part of proximal vas precursor develops ureter and an ectopic insertion of the vas to the ureter.

造影を施行すれば確実であるが若年者で副睾丸炎をくり返す場合、稀な奇形ではあるが精管開口異常も念頭において検査すべきである。

治療：多くの症例では合併した消化器および尿路奇形の治療が優先され、また片側例が多いことから単に精管切除術を施行し副睾丸炎に予防につとめることが多い。しかし両側例の1例では、精管精管吻合および精管の逆流防止術を施行している⁹⁾。自験例のように両側精管の開口異常の場合不妊症の治療が問題となってくる。特に尿管への異常開口例では、精囊腺および射精管が欠損しており、射精できないことはもちろん、逆行性射精のように、膀胱内より精子を回収し人工受精させること^{13,14)}も不可能である。また副睾丸に人工的に精液瘤を作りそこより精子を回収して受精させる試み¹⁵⁾もあるが、まだ試行段階である。

発生：ウォルフ氏管の発生異常についてみると、近位ウォルフ氏管では精管欠損症、副睾丸の異常として、また遠位ウォルフ氏管の異常としては、尿管の開口異常および精囊腺、精管の開口異常としてあらわれてくる。

尿管の開口異常に関しては、本邦でも多くの報告が

ありまたその発生や分類に関して多くの考えがあるが、いまだ確定的なものはない。発生学的にみると胎生4週ごろ、中腎管の尾部に尿管芽が発生してくる。この尿管芽の発生してくることを総腎管 (common mesonephric; CMD) と呼び将来尿生殖洞に吸収され膀胱三角部および後部尿道の一部を形成するところから trigonal precursor と呼ばれる。

Mackie, and Stephens¹¹⁾ はこの総腎管を3つの zone (craniozone (Cr), normal zone (0), caudozone (Ca)) に分け、尿管芽の発生する位置により尿管の異所性開口を分類、説明し、Weigert-Meyer の法則も理論的に説明している。つまり尿管芽の発生が craniozone にあると、総腎管が短かく生殖洞への吸収が早い。ため尿管口の位置は外側方に偏位 (B-C-D) し、膀胱の筋層をつらぬく距離が短くなり逆流がおこりやすくなる。逆に尿管芽の発生が caudozone にあると、総腎管が長く、生殖洞への吸収が不十分で尿管口は後部尿道および精管・精囊腺に開口 (G-H) することとなる (Fig. 6)。

胎生7週ごろになると、総腎管はほとんど生殖洞に吸収され、尿管口および精管は別々に生殖洞に開口す

る状態となる。Tanago¹²⁾はこの時点で尿管口は外側上方へ、精管は内側下方に回転するように吸収移動するため睪丸の下降とともに精管は尿管と交差する位置にくると説明している (Fig. 7)。

さて精管の開口異常を考えるととき Gibbons ら⁹⁾は、総腎管に隣接した中腎管の部分、発生的に尿管にも精管あるいは精囊腺どちらにも分化できる部位として proximal vas precursor (PVP) と名づけた。そして精管の開口異常症例では、総腎管がもともと短いために尿管芽の発生する位置が本来精管あるいは精囊腺となる proximal vas precursor に隣接するかその上となる。その結果尿生殖洞に総腎管が吸収される段階で、本来精管、精囊腺となる部位が一部膀胱三角を形成するため精管の膀胱開口となったり、一部尿管へと分化するため精囊腺を形成せず、精管の尿管開口を生ずることとなると説明している (Fig. 8, 9)。

一方精管の尿管開口症において、精管の開口部以下の尿管を総腎管の残存とする考えもある¹⁰⁾が、精管の尿管開口例では、全例精囊腺を認めないこと、組織学的に精管の一部が尿管と同様の組織像を示すこと^{8,9)}などから否定的であると考えられる。

ま と め

両側精管の尿管への開口異常という稀な奇形を経験したので報告する。

若年者で副睪丸炎をくり返す者また同時に泌尿生殖器、消化器奇形を合併する者では、精管の開口異常も稀な疾患ではあるが念頭において検査すべきである。

成人で両側例の場合不妊症の治療が問題となるが、現在治療法を検討中である。

発生学的には、膀胱三角部を形成する総腎管が短いためと考えられ、それと尿管芽の発生位置により精管の異所開口部位が決まると考えられる。

(本論文の要旨は、1979年6月、第386回日本泌尿器科学会東京地方会にて報告した。)

文 献

- 1) Seitzman, D. M. and Patton, J. F.: Ureteral ectopia: combined ureteral and vas deferens anomaly. *J. Urol.*, **84**: 604, 1960.
- 2) 古屋聖児：右精管の右盲端尿管への異所性開口症例。第213回日本泌尿器科学会北海道地方会発表, 1972.
- 3) Alfert, H. J. and Gillenwater, J. Y.: Ectopic vas deferens communicating with lower ureter: embryological considerations. *J. Urol.*, **108**: 172, 1972.
- 4) Tejmarova, V. J. and Paces, V.: Mundung des linken Ductus deferens in die Harnblase. *Fortschrgeb. Roentgenstr. Nuklearmed.*, **119**: 637, 1973.
- 5) Borger, J. A. and Belman, A. B.: Uretero-vas deferens anastomosis associated with imperforate anus: an embryologically predictable occurrence. *J. Pediat. Surg.*, **10**: 255, 1975.
- 6) Redman, J. F. and Sulieman, J. S.: Bilateral vasal-ureteral communication. *J. Urol.*, **116**: 808, 1976.
- 7) Reisman, D. D.: Epididymitis owing to ectopic ejaculatory duct: a case report. *J. Urol.*, **117**: 540, 1977.
- 8) Boles, E. T., Lobe, T. E. and Hamoudi, A.: Congenital vas deferens ureteral connection. *J. Pediat. Surg.*, **13**: 41, 1978.
- 9) Gibbons, M. D., Cromie, W. J. and Duckett, J. W.: Ectopic vas deferens. *J. Urol.*, **120**: 597, 1978.
- 10) Schwarz, R. and Stephens, F. D.: The persisting mesonephric duct: high junction of vas deferens and ureter. *J. Urol.*, **120**: 592, 1978.
- 11) Mackie, G. G. and Stephens, F. D.: Duplex kidneys: a correlation of renal dysplasia with position of the ureteral orifice. *J. Urol.*, **114**: 274, 1975.
- 12) Tanagho, E. A.: Embryological basis for lower ureteral anomalies: a hypothesis. *Urology*, **7**: 451, 1976.
- 13) Hotchkiss, R. S., Pinto, A. B. and Kleegman, S.: Artificial insemination with semen recovered from the bladder. *Fert. & Steril.*, **6**: 37, 1955.
- 14) 勝岡洋治・ほか：AIHにて男児を得た逆行性射精の1例。日本不妊会誌, **20**: 18, 1975.
- 15) Wagenknecht, L. V., Holstein, A. F. and Schirren, C.: Tierexperimentelle Untersuchungen zur Bildung einer künstlichen Spermatozele. *Andrologia*, **7**: 273, 1975.

(1979年9月25日受付)