睾丸の交叉性偏位を伴う男性假性半陰陽

東大分院泌尿器科 駒 瀬 元 治
(醫長: 落合京一郎助教授) 晝 間 哲

CROSSED ECTOPIA OF TESTIS IN A MALE INTERSEX.

Motoharu Komase and Toru Hiruma

Section of Urology, Branch Hospital of the University of Tokyo.

(Director: Ass. Prof. K. Ochiai)

I, 前がき

われわれは最近睾丸のいわゆる横偏位 (transverse ectopia) を伴う男性假性半陰陽の稀有例を経験したので、症例を報告するとともに睾丸偏位に関する定義、病理などについて若干の考察を行うことにする。

II, 症例

患者: 満7歳 (昭和25年1月下旬生れ)。

家族歴: 両親は血族結婚ではないが、イトコの1人に停留睾丸がある (當科にて睾丸固定術を施行)。同朋は兄1人、姉2人で患児は第4子 (末子)。

既往歴: 満期安産、出産時すでに外陰部の異常 (尿道下裂) を発見されたが男子として屈出、そのまま育てられている。間もなく左鼠脛ヘルニアの存在が判り、生後6カ月目にその手術をうけ、同じ頃、右陰嚢内に睾丸のないに気づかれた。昭和30年2月 (5歳) に某大學病院で尿道下裂として陰莖變曲のは正手術をうけ、半年後の11月に尿道成形術を希望し當科を訪れた。

所見及び治療経過: 栄養はよいが年齢に比して體格は小さく、性質も活発でない。全身所見には特別の異常はない。左鼠脛部にヘルニア手術の小癢痕がある。

陰莖は發育が悪く、變曲はまだかなり強い。外尿道には陰嚢のつけねに開口している。陰嚢は分割してはいないが、右半は發育が極めて悪く睾丸は觸れない。左半は略々正常で左睾丸と思われる豌豆大の内容物を觸れる。右睾丸は右鼠脛部にも下腹部にも觸知できない。しかしこの初診時にはまだ左陰嚢内にももう1個睾丸のあることは気づかなかつた。われわれが多くの尿道下裂例で認めているように、本症例でも會陰部にははっきりした陥凹部が存在する。

直腸内觸診で前立腺と思はれるものを觸れ得ない。尿

の17-K.S. は 2.1mg, Sex chromatin は男子型。

以上の所見から陰嚢部尿道下裂 (hypospadias scrotalis) び右停留睾丸 (恐らくは腹部停留睾丸) と診断した。しかし陰莖の變曲は正がまだ充分でないので、昭和30年11月中旬に索切除 (chordotomy) の再手術を行い、以後週2回1000國際單位ずつの P.U. Gonadotropin 注射を行った。(7週間に總量 14000單位)。このホルモン療法によって陰莖は多少の發育傾向を示したが、右陰嚢の増大はなく、睾丸下降の徴候も認められなかった。ただこの頃になり、右陰嚢つけねに左睾丸とは別の腫瘤を觸れるようになった (第1圖及び第2圖)。

昭和31年2月中旬に Denis-Browne 法による尿道成形手術を施行したが失敗、手術創の大部分は吻開した。

そこで同年8月上旬に再度の尿道成形術を行い成功した (第3圖)。たゞこの間に時々來院させて診察すると、左陰嚢上方の腫瘤も睾丸らしい疑いが強くなり、交差性睾丸偏位と考えられるに至ったので、尿道成形術と同時に開腹術と左陰嚢の切開術を行い、この腫瘤の本體をも検索した。

まず正中線切開で開腹。右睾丸は腹腔内に見當らず、更に右の鼠脛管を開けて検査したがここにも発見出来ない。右の Vasa spermatica は正常な走行で下降しているが、右の内鼠脛輪にはいらず、その稍手前で左方に向っている。右の精管も発見できず、たゞ右内鼠脛輪から右の Vasa spermatica に平行して同じく左方に向う線維性の索状物があり、これは痕跡子宮に連なっている (第4圖)。

そこでこの Vasa spermatica に沿い膀胱後面で腹腔を横に切開してこれを膀胱後面から剝離すると、正中線部に先端が紡錘状をなした鉛筆の太さの索状物が縦走し

第1圖 索切除術後，下方が外尿道口

第4圖 手術所見の略圖

第2圖 左側陰嚢内に2個の腫瘤が認められる

第5圖 左陰嚢にある左、右の睾丸（向つて右は左側，左が右側睾丸）

第3圖 尿道成形手術後 初診時

第6圖 剔除した腔及び痕跡的子宫

ており、この下端は膀胱底部から後部尿道に連っている（これは極めて痕跡的の子宮と腔である、第4圖及び第6圖）、前立腺、精囊腺と思われる構造は存在しない。この子宮先端は更に線維性の細い索状物となって左の内鼠脛輪へと走っているが、この索状物中に精管を思わせる構造は識別できない。左の *Vasa spermatica* は正常の走行で下降し左内鼠脛管にはいつている（第4圖）。

次に陰囊根部を切開して内容物を露呈すると、左陰囊内の2個の腫瘍はそれぞれ辜丸であった（第5圖）、ヘルニア手術のためか、2個の辜丸は同一の *Tunica vaginalis propria* に包まれているのか、別々に包まれているのかは確實に判定できなかった。しかし兩辜丸はうすい線維性の組織で連結されており、比較的容易に鈍性に分離することができ、兩側とも同一の左鼠脛管を通過している。

副辜丸の發育は正常で辜丸をとり巻いてこれに附着している（停留辜丸の大部分では辜丸と副辜丸の連結は頭部だけであるのが特徴—これについては書間に別に原著として發表する）。

ところが副辜丸尾部から急に細くなっている。右側では全く精管が識別できず、左側では緑様のそれと思われる極めて細いものが認められるが、外鼠脛輪附近では線維性の索状物となっており、これは左鼠脛管を通過して痕跡的の子宮の先端からの索状物に連っている。

即ち本症例は右辜丸が左鼠脛管を通過して左の陰囊内に下降偏位したもので（辜丸の交差性偏位）、かつ外陰部は尿道下裂を示し同時に男子副性器の代りに痕跡的の子宮と比較的よく發達した腔をもつ男性假性半陰陽（male intersex）であることを確認したわけである。なお本症例は男子とするのが妥當と考え、子宮及び腔を切除して尿道形成術を行ったもので、検査のため右陰囊術と左辜丸の一部組織切除を行った。

辜丸の組織像は左右とも殆ど同様で、全體として粗な間質組織が割合多くて、精細管は数が少なくかつ小さく内腔を形成しておらず、殆んど全部が精祖細胞（spermatogonium）の段階にあり、Leidig細胞も殆んど識別できない。つまり、年齢に比して多少發育がおくれていると思われる程度である。右副辜丸（頭部から體部にかけた部分）は割合はつきりした發育を示している。腔は多層の扁平上皮からなっており、角化は見られない。

III, 考按

正常新生児ではいわゆる辜丸下降（*Descendus te-*

stis）なる現象により、辜丸はそれぞれ同側の腹腔→内鼠脛輪→鼠脛管→外鼠脛輪という徑路で陰囊内に納まっている（*Scorer, 1955*など）。ところが何等かの原因でこの徑路の途中どこかに辜丸が陰囊内に下降しない状態を一般に潜伏辜丸（*Cryptorchism*）あるいは停留辜丸（*Retentio testis*）とよんでいる（腹部だけを潜伏辜丸とよぶのがよいという人もあり、著者等は定義の曖昧さを避けるため停留辜丸に統一するのがよいという意見をもっている、これについては別に書間に報告する豫定である。）これに對し、陰囊内に納まらず上述した辜丸下降の正常徑路以外の部位に辜丸が存在する場合を辜丸偏位（*Ectopia testis*）と名づけ、停留辜丸（あるいは潜伏辜丸）と區別する人が多く、大ていの成書や教科書もこれを採用している。そしてこの辜丸偏位はその存在する部位によつて腹部又は間質部偏位（*abdominal or interstitial ectopia*）恥骨陰莖部偏位（*pubopeneile ectopia*）、股部偏位（*crural or femoral ectopia*）横偏位（*transverse ectopia*）などに細別されている。このうち前3者は辜丸が同側の鼠脛管を出てからそして異常の部位に停つたものであるが、横偏位だけは辜丸が反対側の鼠脛管を反対側辜丸と一語に通過下降して反対側陰囊内に存在する場合と定義されており（*Herbut, 1952*など）、従つて前3者とは病型所見が著しく異っているわけである。

われわれは現在まで51例（72側）の停留辜丸のうち反対側腹壁あるいは同側腸骨嵴部に偏位したいわゆる辜丸偏位の3例を経験しているが（東京地方會にて既報）これら症例の臨床的檢索からこのような形の辜丸偏位は當然停留辜丸に含めてよいものであるという見解に達している。しかし、いわゆる横偏位だけはわれわれの症例におけるように反対側鼠脛管を通っているという點で、直ちに同じ範疇に入れてよいかどうかが問題になる。

辜丸の横偏位の現在までの文獻例は人によってまちまちであるが、報告が極めて少ないことは確かである。外國では *Hertzler (1916)* が自驗例を加えて14例を集めており、*Lowsley & Kirwin (1954)* がその著書中に1例の自驗例をあげている外、最近10年間には *Lombias & Meerooff (1955)*、本例はアルゼンチンのもので詳細を知り得なかった）の報告を見るに過ぎない。ところが *Herbut (1952)* はその著書に *Corner (1910)* の報告を記載しているだけである。本邦例は江里口氏（昭6）によると氏の症例を加えて5例、それ以外に尾關氏（昭10）の症例があるが外には報告が見當らない。これらの

報告の大部分は開腹による検索を行っていない。従って正確な點は不明であるが、その全部は反対側の鼠脛管を通じて反対側の陰嚢に下降しているものらしく、同側の鼠脛管を通過してから腹壁上を横切って反対側陰嚢にはいつているという記載は1例にもない。既述のように著者例は睾丸が反対側の鼠脛管を通過していることを確認しており、睾丸横偏位とはすべてこの形成の位置異常を考えてよいようである。

以上の考察から、著者等は次のような定義がより妥当ではないかと考えるものである。即ち横偏位を除く他の形の睾丸偏位はすべてこれを停留睾丸とよぶものがよく、睾丸偏位という名稱はこの横偏位だけに限るのがよい。また横偏位あるいは横断性偏位 (transverse ectopia) という名稱 そのものも 睾丸交差性偏位 (Crossed ectopia of testis) とした方がよいと考える。

それなら、この睾丸交差性偏位はどのようにして発生するものであろうか。これは廣く停留睾丸の發生病理にも関連するもので種々の解釋が行われているが、本論文ではこの交差性偏位にのみついて考察して見る (停留睾丸については晝間が別に原著として發表の豫定)。Moskowitz (1938) はいはゆる潜伏睾丸の發生病理に關し、女子の性腺たる卵巢は何故腹腔内にあるかという發生學と對比して次のように説明している。

女子では胎兒期に Canalis uterovaginalis がつくられる頃になると、左右の Müller 氏管は互に密接してきて、小骨盤内を横に走る Lig. latum を形成する。正常男子の場合はかゝることがないから、Conus inguinalis の緊張と睾丸繫帯 (Gubernaculum) の索引によって鼠脛管を通過して下降するが (外部下降)、Lig. latum がつくられると下方への索引力の分力は無効化し性腺 (卵巢) は鼠脛管に入らず腹腔内に止まり、繫帯の腹腔内部分 (abdominal portion) は Lig. rotundum を形成するわけである。Moskowitz によると、潜伏睾丸とは男子としての性分化 (sex differentiation) の過程の途中で、程度の差はあるが何かの原因で Lig. latum の形成という異常病變が生じたため、女子の卵巢の場合と同じ機轉によって睾丸が高位に固定されるからと解釋している。そして Moskowitz はすべての停留睾丸 (鼠脛部睾丸を含めて) とは、男子としての性分化のごく初期に女子への方向への分化が時期的に先行したため (具體的にいえば程度の差はあれ、Lig. latum の形成) に生じたもので、つまり廣い意味での Intersexualität の範疇に屬するという。

著者等は停留睾丸がすべて Moskowitz のこのような機轉だけで発生したものとは考えていないが、少くとも腹部停留睾丸に關していえば著者等の解釋も Moskowitz のそれに近いもので睾丸交差性偏位の發生病理にも手掛りなるものである。この點に關連して興味あるのは著者例が male intersex だったということとその開腹手術所見である。

既述のように文獻例の大部分は開腹検査を行っておらず、記載も簡単に不明確な點が少くないが、著者等の例に類似しているのに木村氏 (1918) の症例がある。その他、江里口氏によると26例のうち、9例 (同氏の症例も同様) では未成熟子宮あるいは卵管と思われる構造物を兩睾丸の間に認めているという。従って睾丸交差性偏位の大部分はこの病變のみならず他の發育異常、恐らくは女性性器系の遺残が併存していると推定できるであろう。いいかえると、Moskowitz の説くように性分化の途中で女性方向への分化も存在したと考えることができるわけで、著者等の症例についていえば次のように解釋できよう。本症例では陰と痕跡の子宮をもっていることから、その duct system が早期に女性方向への分化を生じたことは明かである。性腺はもちろん睾丸に發育したわけであるが、Canalis utero-vaginalis の形成によって現在のはっきりしないが Müller 管からの Lig. latum もつくられ、しかもこれに睾丸の外部下降より以前に生じたため右の睾丸は腹腔内に止まるに至つた。ところが左側ではこの Lig. latum の形成がなく (あるいは極めて軽度)、従って正常な睾丸下降が行われることになったが右側に不完全ながら Lig. latum が形成され卵管 (あるいは精管であるかどうかは線維性索狀物になっているため不明) 上部は密着しているため、左睾丸の下降に引張られて右睾丸は腹腔内を横切って左鼠脛管を通ずるに至つたものであろう。こう考えると手術時に子宮先端と右内鼠脛輪との間に線維性索狀物が發見されたことも了解できる (第4圖)。つまり、この索狀物は右睾丸繫帯の腹部部分が女性方向への分化のため不完全に形成された Lig. rotundum ではないかと考えられる。また精管とか卵管らしいものが上方ではっきりせず、睾丸近くで不明瞭に分かれていたことも了解できる。左側は下降が正常に行はれており、そのためにかゝる索狀物は存在しない。なお本症例では初診時には左陰嚢内に右睾丸を觸れず、ホルモン療法後にはじめてははっきり觸知できるようになっている。従つて右睾丸は恐らく左陰嚢上部か外鼠脛輪近くにあり (停留睾丸)、ホルモ

ン療法である程度下降が促進されたと考えられる。

なお睾丸の交差性偏位との異同がはっきりしないものに睾丸融合症 (Synorchidism) がある。たゞこの奇形は更に稀れなものらしく (Herbut など) その関係を論ずることはできないが、腎の場合と同じように恐らく兩者の間には移行形も存在するにちがいない。

IV, 結論

ヘルニア及び陰囊部尿道下裂を有する7歳男子の睾丸交差性偏位例を報告した。臨床的検索の結果、本症例は腔及び痕跡的子宮をもつ male intersex であり、右睾丸は腹腔内を横切って左鼠脛管を通して左の陰囊内に偏位したものであることを確かめた。

本症例に関連して、いわゆる睾丸偏位の定義を検討し、睾丸偏位はこの交差性の形だけに限るのがよく、また病名としては睾丸交差性偏位 (Crossed ectopia of testis) がよいという意見を損唱、更に本症例の手術所

見を基にしてその發生病理についての著者等の解釋を述べた。

文 献

- 1) Campbell, M.: Urology, Vol., 1, P 463. Saunders, Philadelphia, 1954.
- 2) Campbell, M.: Clinical Pediatric Urology. P, 321, Saunders, Philadelphia., 1951.
- 3) 江里口春志, 日泌尿會誌, **20**, 131, 1931.
- 4) Herbut, P.A.: Urological Pathology, Vol. II P. 1108, Lea & Febiger. Philadelphia, 1952.
- 5) Hertzler, A.E.: Surg. etc., **23**, 597, 1916.
- 6) 木村辰三, 臨床醫學, **6**, 1067, 1918.
- 7) Kimura, T.: Ann. Surg., **63**, 420, 1918.
- 8) Moskowicz.: Arch. klin. Chir., **192**, 209, 1938.
- 9) 尾關彌一郎, 體性, **22**, 1, 1935.
- 10) Scorer.: Brit. J. Urol., **27**, 374, 1955.