论著

文章编号:1000-5404(2013)22-2486-04

# 睾丸横过异位畸形的诊断和治疗:附1例报告并文献复习

罗 勇,张克勤,李波军,张 勇,张 超,徐光辉,刘 扬,李彦锋 (400042 重庆,第三军医大学大坪医院野战外科研究所泌尿外科)

[摘要] **目的** 结合1例睾丸横过异位患者的诊治过程,复习有关文献探讨其病因学、诊断方法和治疗措施。**方法** 本院收治1例青年男性患者存在左侧睾丸横过异位伴同侧精索鞘膜积液,右侧腹股沟斜疝,右侧附睾囊肿,手术证实右侧腹股沟2根输精管和2根精索,右侧阴囊内2个睾丸。将异位的左侧睾丸通过阴囊纵隔复位固定于对侧阴囊肉膜下,并行左侧精索鞘膜大部切除,右侧腹股沟疝修补术,右侧附睾囊肿切除术。根据该患者的临床表现、诊断和治疗过程,结合相关文献对该病的整体临床特征进行分析。**结果** 本例患者术后诊断为:①左侧睾丸横过异位;②左侧精索鞘膜积液;③右侧腹股沟复发疝;④右侧附睾囊肿;⑤弱精症。术后患者病情恢复顺利,术后随访3个月,复查见患者双侧睾丸位置良好,形态大小和血供正常。其他伴随异常均消失。**结论** 睾丸横过异位作为一种罕见的生殖系发育畸形,常伴有腹股沟疝、精索鞘膜积液甚至苗勒氏管持续存在综合征等多种异常,宜及早采取手术治疗并同时纠正伴随病变。为避免伴随的胚胎发育残迹的远期癌变,术后需长期随访。

[关键词] 睾丸横过异位;畸形;隐睾;诊断;治疗
[中图法分类号] R697.22 [文献标志码] A

# Diagnosis and treatment of transverse testicular ectopia: a case report with literature review

Luo Yong, Zhang Keqin, Li Bojun, Zhang Yong, Zhang Chao, Xu Guanghui, Liu Yang, Li Yanfeng (Department of Urology, Daping Hospital, Institute of Surgery Research, Third Military Medical University, Chongqing, 400042, China)

[**Abstract**] **Objective** To discuss the etiology, diagnosis and treatment of transverse testicular ectopia (TTE). **Methods** Here reports a case of transverse testicular ectopia, which was found with 2 vas deferens and 2 spermatic cord, 2 testes on the right side of the inguinal canal and the scrotum during the operation. The spermatic cords were fully free, and the ectopic testis was fixed by traverse the scrotal mediastinum. The associated anomaly such as the right inguinal hernia was repaired and the hydrocele of spermatic cord was treated by resection of the redundant tunica vaginalis at the same time. The clinical data of this case was analyzed according to its manifestation, diagnosis and treatment, combined with literature review. **Results** This case was finally diagnosed as left transverese testicular ectopia, left funicular hydocele, right recurrent inguinal hernia, right epididymal cyst, and asthenozoospermia. Bilateral testes were in proper positions with normal vascular supply in 3 months after the operation. During follow-up, the patient had biliteral testes in normal positions, in well shape and blood supply. **Conclusion** TTE is a rare congenital abnormality of testicular maldescent. It is usually accompanied by other anomalies such as inguinal hernia, hydrocele and persistent or rudimentary Mullerian remnants. Early operation is the best option for TTE treatment. Long-term postoperative follow-up is highly recommended to prevent the risk of malignancy in the embryonic remnants.

[**Key words**] transverse testicular ectopia; malformation; undescended testis; diagnosis; treatment

Corresponding author: Li Yanfeng, Tel: 86-23-68757942, E-mail: lyf1000@aliyun.com

睾丸横过异位(transverse testicular ectopia, TTE)指双侧睾丸通过同一侧腹股沟管或阴囊进行下降和迁移的生殖系先天畸形[1],常伴有泌尿生殖系多种畸形,如腹股沟疝、尿道下裂、精囊囊肿,临床上十分罕见。如果异位的睾丸位于高位,常造成诊断上的困难。2013年1月本科收治1例睾丸横过异位伴右侧腹股沟斜疝、精索鞘膜积液和精囊囊性扩张的青年男性患

[通信作者] 李彦锋,电话:(023)68757942,E-mail:lyf1000@aliyun.com
[优先出版] http://www.cnki.net/kcms/detail/51.1095.R.20130923.1226.003.html(2013-09-23)

者。本研究对该例患者的临床表现、诊断和治疗过程进行总结,结合文献对该类罕见疾病的整体临床特征进行分析,旨在提高临床工作中对该类罕见畸形的认识和理解。

## 1 临床资料

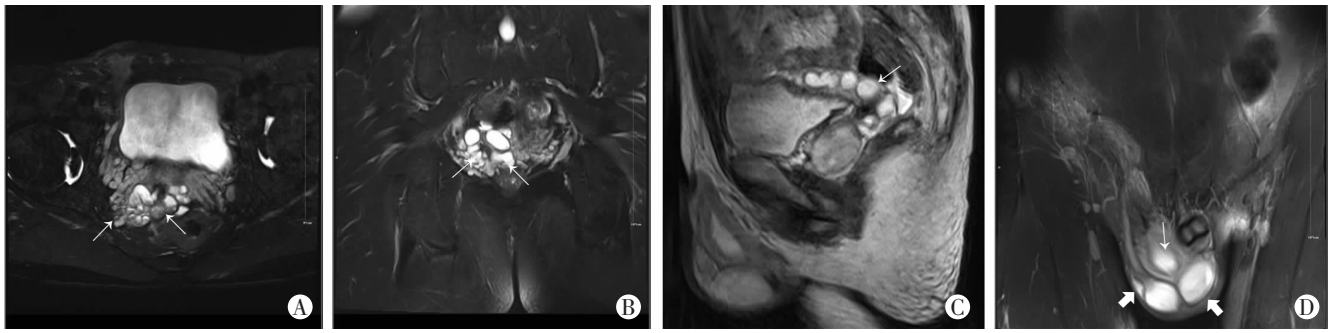
患者,男性,30 岁,因右侧阴囊及腹股沟区包块 30 年,不育 5 年,于 2013 年 1 月收入我科。2 岁时曾诊断为右侧腹股沟疝进行疝修补术,术后不久即复发。结婚 5 年配偶未孕。曾在院外诊断为"弱精症"。查体:右侧腹股沟区可见长约 4 cm 的手术切口瘢痕,内环口平面可扪及一约 3.0 cm×3.0 cm×4.0 cm 大小的可复性囊性包块,压迫内环口咳嗽有冲击感;同时在右侧腹股沟区还可扪及另一约 2.5 cm×2.5 cm×5.0 cm 的长梭形无痛性包块,质地较硬,上界不清。左侧阴囊空虚,左侧阴囊内未触及睾丸及精索,右侧阴囊饱满。右侧阴囊内可扪及正常大小的右侧睾丸,大小约 4.0 cm×2.5 cm×2.5 cm,并同时扪及另一类似右侧睾丸大小包块,位于右侧睾丸内上方区域,右侧睾丸与该包块分界清楚(图 1)。阴囊彩超显示:在右侧腹股沟区可触及的较硬包块处可探及一 2.2 cm×2.3 cm×4.9 cm 的实质性回声影,其内可见 0.8 cm×0.8 cm×1.9 cm 的长条形无回声区,呈梭状,其囊壁厚为 0.5 cm;右侧阴囊内可探及 2 个睾丸样实质性回声影,大小分别为 3.9 cm×2.5 cm×2.1 cm 和 3.5 cm×2.2 cm×2.3 cm,一附睾头可见 1.1 cm×0.9 cm×0.9 cm 液性暗区。阴囊及盆腔磁共振(MRI)影像显示,在 $T_2$WI图像下,右侧阴囊内可见 2 个正常大小的睾丸、2 条精索和一高信号的椭圆形囊性结构。双侧精囊均偏向右侧,长度及宽度均显著增大,呈明显扩张的囊管状结构(图 2)。入院诊断为:①左侧睾丸横过异位? ②右侧腹股沟复发疝;③右侧精索鞘膜积液;④右侧附睾囊肿;⑤弱精症。手术方法:采用右侧腹股沟斜切口,术中分离探查腹股沟区,显示存在 2 条精索及 2 条输精管(图 3),内侧精索(左侧)内存在一 1.5 cm×1.5 cm×10 cm 厚壁,质地较硬的囊性包块,分离切开该囊性包块,可见内有乳白色粘稠液体约20 mL,囊腔上部深及盆腔,下至外环口平面,均呈盲端,将上述囊性包块壁完整切除并送病理检查。沿外侧精索探查顺利找到术前所示右侧腹股沟疝,首先行疝囊高位结扎术。术中牵拉 2 条精索可见 2 个睾丸同时迁出右侧阴囊。检查见 2 条输精管完好,充分游离双侧睾丸、精索和输精管,将横过移位的左侧睾丸通过阴囊纵隔固定于左侧阴囊肉膜下,切除右侧附睾囊肿并还纳右侧睾丸,常规方法进行右侧腹股沟疝修补术。



**图 1 睾丸横过异位畸形患者的阴囊外观**

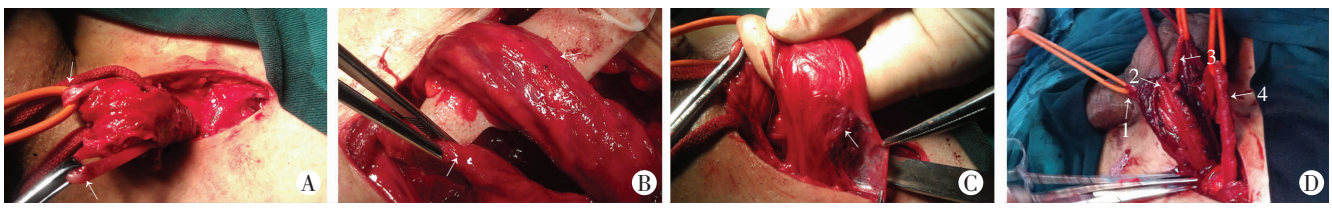
## 2 结果

本例青年男性患者经手术证实存在左侧睾丸横过异位伴精索鞘膜积液,右侧腹股沟斜疝,右侧附睾囊肿,分别进行了左侧异位睾丸的复位固定,精索鞘膜大部切除,右侧腹股沟疝修补,右侧附睾囊肿切除术。术后诊断为:①左侧睾丸横过异位;



A、B:MRI $T_2$WI 不同横断面可见双侧精囊(↑)同位于偏右侧,其内呈卷曲状管状高信号影;C:MRI $T_2$WI 矢状位可见显著囊性扩张增大的精囊(↑),其内呈高信号影,其边缘超越膀胱顶部;D:MRI $T_2$WI 冠状位可见双侧睾丸及精索同位于右侧阴囊(⬆),其上方可见一大小约 2.5 cm×2 cm高信号影提示一囊性结构(↑)

**图 2 睾丸横过异位畸形患者阴囊的影像学表现**




A:右侧腹股沟可见 2 条输精管(↑);B:右侧腹股沟区可见 2 条精索(↑);C:切开囊性包块可见曲张团块(↑);D:右侧腹股沟 1:左侧输精管;2:左侧精索;3:右侧输精管;4:右侧精索

**图 3 睾丸横过异位畸形患者术中观察**

②左侧精索鞘膜积液;③右侧腹股沟复发疝;④右侧附睾囊肿;⑤弱精症。术后患者病情恢复顺利,术后随访3个月,复查见双侧睾丸分别位于双侧阴囊内,形态大小正常。其他伴随异常均消失。

## 3 讨论

### 2.1 定义和病因

TTE又称为单侧双睾丸,睾丸假性重复,横过异常睾丸下降不良,指双侧睾丸通过同一侧腹股沟管或阴囊进行下降和迁移的生殖系先天畸形[1]。横跨睾丸和对侧睾丸在该侧腹股沟管或阴囊相遇,横跨到对侧的睾丸称为横过异位睾丸,常表现为一侧隐睾同时伴有其他畸形。TTE临床十分罕见。Von-Lenhossek等[2]在1886年首次通过尸检描述该畸形,Halsted在1907年作出第1例临床诊断[3];至2008年报道仅100余例[4]。Ramareddy等[5]报道190例隐睾患儿中仅发现7例患儿患有TTE,占总例数的3.7%。

目前关于TTE的病因和发病机制仍不十分清楚,存在较多的推测、学说和理论。大多数认为与生殖系统胚胎发育有关,男女两性胚胎早期都具有中肾管即午菲氏管和副中肾管即苗勒氏管两对生殖管道,分别发育为男、女性生殖管道。由体细胞即未来的支持细胞形成的性索与原始性腺细胞相嵌合,分化形成睾丸。睾丸开始分泌两种激素:抗苗勒氏管激素(anti-mullerian hormone, AMH)和睾酮。AMH即苗勒氏管抑制物质或因子[mullerian inhibiting substance (MIS) or factor (MIF)],是一种负责苗勒氏管退化的糖蛋白。它通过与围绕苗勒氏管的间充质细胞表面的膜受体特异性结合,诱导苗勒氏管,即子宫、输卵管和阴道上部的原基从顶端向尾端方向的退化。睾丸内Leydig细胞分泌的睾酮则诱导午菲氏管分化为附睾、输精管和精囊。如果睾丸的支持细胞不分泌MIS或苗勒氏管对MIS不敏感可导致苗勒氏管持续存在综合征(persistent mullerian duct syndrome, PMDS)。如胚胎发育期间中肾管和副中肾管发育、分化异常或退化不全将可能导致TTE的发生。Gupta等[6]和Gauderer等[7]均认为中肾管在发育时黏附、融合早,一侧睾丸的下降会带着另一侧睾丸一起下降。Berg[8]推测TTE为2个睾丸由1个生发嵴发育而来。Kimura[9]提出若双侧输精管为同侧起源则发生TTE。多位学者认为睾丸引带的缺陷或患侧腹股沟梗阻等解剖因素可导致TTE[10-12]。Aoki等[13]报道1例性染色体异常伴性腺发育障碍的患者同时伴随TTE,认为与雄激素分泌异常或雄激素受体异常有关。目前仍未找到令人信服的证据证实上述推测,其病因和发病机制仍需要进一步研究。

### 2.2 临床表现

TTE表现为一侧无睾丸,对侧腹股沟管内或阴囊内2个睾丸。异位睾丸可位于对侧腹股沟至阴囊的不同位置,同时伴有其他畸形。Gauderer等[7]将睾丸横过异位按伴随病变不同分为Ⅰ、Ⅱ、Ⅲ型:Ⅰ型仅伴有腹股沟斜疝,常位于被迁移侧,发生率为40%~50%。Ⅱ型伴有苗勒氏管持续存在综合征,发生率为30%。根据血MIS可分为MIS阴性、MIS阳性两种类型。Ⅲ型伴有除苗勒氏管持续存在综合征以外的其他多种异常,如腹股沟疝、假两性畸形、尿道下裂、阴囊异常、精囊囊肿、肾盂输尿管连接处梗阻、双肾发育不全等,而无苗勒氏管残留,发生率为20%。同时睾丸横过异位伴有不育和远期肿瘤的发生率与其他睾丸异常相比相对较高。异位睾丸远期肿瘤发生率在18%左右,与隐睾肿瘤发生率相近[14-15]。本例患者即伴有多种结构异常,包括伴右侧腹股沟斜疝、精索鞘膜积液,附睾囊肿,精囊囊性扩张等表现。除术中发现的明显异常外,尤其突出的结构异常是在影像学检查中所见的双侧精囊的显著增大和囊性扩张。如果按照上述睾丸横过异位的分型,本例患者应归为Ⅲ型。

### 2.3 临床诊断

由于TTE发病率极低,临床上一般不易联想到该病,因此TTE患者往往以隐睾、腹股沟斜疝、鞘膜积液等就诊,术前能获得诊断的病例目前报道较少。Naji等[16]认为如果患者患有一侧的腹股沟疝同时伴有对侧的隐睾,一般首先考虑TTE。国外统计发现TTE就诊时的平均年龄为4岁,随着对TTE畸形的进一步认识和先进技术的应用,对TTE术前诊断率逐步提高。诊断该病最重要的是对睾丸进行确定和定位,也是治疗睾丸畸形的基础。最常用的辅助检查为超声,作为TTE和其他泌尿生殖系畸形的首选。术前CT检查有助进一步明确诊断,可同时了解伴发畸形。Lam等[17]报道磁共振成像(MRI)及磁共振静脉成像(MRV)有助于TTE的诊断;选择性精索内静脉造影,核素检查(ECT)、同位素标记绒毛膜促性腺激素(HCG)结合γ照相扫描可有效显示睾丸,对异位睾丸进行定位。目前,腹腔镜在临床上应用已经非常普遍,可以确定睾丸的位置,并对高位隐睾进行处理,达到诊断和治疗双重目的。Wuerstle等[18]报道3例PMDS合并TTE患者,利用腹腔镜技术诊断TTE并同时行睾丸固定术,术后随访恢复情况良好。在临床上,开放手术或腹腔镜均可作为明确TTE诊断的方法,对双侧腹膜后间隙进行探查。在该病的诊断方面,为避免漏诊或误诊,获得准确的早期诊断,应强调重视详细询问病史和仔细查体,不能仅仅满足于常见的隐睾、疝、鞘膜积液等诊断。本例病例在2岁时就在院外行右侧腹股沟疝手术,但并

未发现该患者存在睾丸横过移位。因此,在临床上有腹股沟斜疝、腹股沟区或阴囊上方难以解释的实性包块而对侧阴囊空虚时应考虑到睾丸横过异位的可能性,术中找不到隐睾也不能草率地诊断睾丸未发育。同时,临床已诊断为睾丸横过异位时还应考虑到同时伴有泌尿生殖系统的其他畸形和存在苗勒氏管持续存在综合征的可能性,因此,术前必要的影像学检查有利于明确患者的整体情况。

2.4 *治疗*

高位TTE可影响患者生殖功能并有睾丸恶变的可能性,手术治疗是最佳选择。手术最好在幼儿2岁前进行。采用睾丸固定术,关键是异位睾丸的归位和伴随先天畸形的处理。手术需要充分游离和解剖双侧输精管和精索,使异位的睾丸无张力地通过阴囊纵隔固定于对侧阴囊。手术方法有传统开放手术和腹腔镜手术两类。传统手术是经腹股沟管切口,通过一侧腹股沟管,实现跨阴囊纵隔睾丸固定,适合于低位的横过异位睾丸和精索足够长的患者。对高位TTE可采用Fowler-Stephens术高位切断精索血管、游离长襻输精管,将异位睾丸固定在对侧阴囊中。因为睾丸血供来自精索内动脉及侧支循环包括输精管动脉和提睾肌动脉,有长襻输精管的睾丸有丰富的侧支循环,所以切断较短的影响睾丸下降的精索内动、静脉,只要保留精索与输精管之间的微血管,异位睾丸的血供将不受影响。对少数不能手术复位、失去内分泌功能的萎缩的高位TTE宜行睾丸切除术。腹腔镜手术可用于诊断和治疗TTE,且具有创伤小、睾丸固定容易,并可同时处理并存的未退化的苗勒氏管结构和其他异常等优点[19-20]。Tepeler等[21]认为腹腔镜对TTE的诊断和处理有优势并且是安全有效的。关于分期手术,文献报道分期手术睾丸萎缩率为6%,而Ⅰ期手术为2%,因此一般多主张Ⅰ期手术。同时对伴发的畸形如影响患者的机能或存在恶变的可能,应做相应手术治疗。但在手术同时是否摘除苗勒氏管目前存在争议,因为残留苗勒氏管可能会引起远期肿瘤,而切除苗勒氏管可能会影响睾丸及输精管的血供。对影响睾丸复位的苗勒氏管应该摘除[18]。本例患者左侧横过异位的睾丸由于本身已经处于阴囊内,故手术仅切开阴囊纵隔,将异位的睾丸固定于左侧阴囊肉膜下。但该患者由于同时存在多种伴随异常,术中均进行了相应的纠正和处理。术后3个月复查,显示双侧睾丸分别位于双侧阴囊内,形态大小正常,血供良好。其他异常如右侧腹股沟斜疝、精索鞘膜积液,附睾囊肿等均恢复良好。本例的精囊显著异常由于没有明显临床症状,未行处理,需长期随访观察。

总之,TIE是一种罕见的男性生殖系统先天畸形,病因不明确。高位的睾丸横过异位术前诊断较为困难,但通过提高对该病的认识,亦可做到早发现、早诊断和及早手术治疗,伴有明显生殖系其他畸形和异常的患者术后尚需要长期随访其胚胎残迹恶变的可能性。

**参考文献:**

[1] Barrack S. Crossed testicular ectopia with fused bilateral duplication of the vasa deferential: an unusual finding in cryptochidism[J]. East Afr Med J, 1994, 71(6): 398-400.
[2] Von-Lenhossek M N. Ectopia testis transversa[J]. Anat Anz, 1886, 1: 376-381.
[3] Fujita J. Transverse testicular ectopia[J]. Urology, 1980, 16(4): 400-402.
[4] Malik M A, Iqbal Z, Chaudri K M, *et al*. Crossed testicular ectopia[J]. Urology, 2008, 71(5): 984. e5-984. e6.
[5] Ramareddy R S, Alladi A, Siddappa O S. Ectopic testis in children: experience with seven cases[J]. J Pediatr Surg, 2013, 48(3): 538-541.
[6] Gupta R L, Das P. Ectopia testis transversa[J]. J Indian Med Assoc, 1960, 35: 547-549.
[7] Gauderer M W, Grisoni E R, Stellato T A, *et al*. Transverse testicular ectopia[J]. J Pediatr Surg, 1982, 17(1): 43-47.
[8] Berg A A. Ⅷ. Transverse ectopy of the testis[J]. Ann Surg, 1904, 40(2): 223-224.
[9] Kimura T. Transverse ectopy of the testis with masculine uterus[J]. Ann Surg, 1918, 68(4): 420-425.
[10] Paltii N P. Transversal ectopia of the testis associated with pseudohermaphroditism[J]. Urol Nefrol (Mosk), 1965, 30(2): 63.
[11] Frey H L, Rajfer J. Role of the gubernaculum and intraabdominal pressure in the process of testicular descent[J]. J Urol, 1984, 131(3): 574-579.
[12] Laplante M P, Walsh P C, Retik A B, *et al*. Campbell's Urology[M]. 7版. 北京: 科学出版社, 2001:2177.
[13] Aoki K, Kuwada M, Fujimoto K, *et al*. Transverse testicular ectopia with disorders of sex development[J]. Indian J Urol, 2012, 28(1): 92-93.
[14] Berkmen F. Persistent mullerian duct syndrome with or without transverse testicular ectopia and testis tumours[J]. Br J Urol, 1997, 79(1): 122-126.
[15] Hughes D T, Croitoru D P. Case report: Crossed testicular ectopia[J]. J Pediatr Surg, 2007, 42(9): 1620-1622.
[16] Naji H, Peristeris A, Stenman J, *et al*. Transverse testicular ectopia: three additional cases and a review of the literature[J]. Pediatr Surg Int, 2012, 28(7): 703-706.
[17] Lam W W, Le S D, Chan K L, *et al*. Transverse testicular ectopia detected by MR imaging and MR venography[J]. Pediatr Radiol, 2002, 32(2): 126-129.
[18] Wuerstle M, Lesser T, Hurwitz R, *et al*. Persistent mullerian duct syndrome and transverse testicular ectopia: embryology, presentation, and management[J]. J Pediatr Surg, 2007, 42(12): 2116-2119.
[19] Dean G E, Shan S K. Laparoscopically assisted correction of transverse testicular ectopia[J]. J Urol, 2002, 167(4): 1817.
[20] Moslemi M K, Ebadzadeh M R, Al-Mousawi S. Transverse testicular ectopia, a case report and review of literature[J]. Ger Med Sci, 2011, 9: Doc15.
[21] Tepeler A, Ozkuvanci U, Kezer C, *et al*. A rare anomaly of testicular descend: transverse testicular ectopia and review of the literature[J]. J Laparoendosc Adv Surg Tech A, 2011, 21(10): 987-989.

(**收稿**:2013-05-27;**修回**:2013-07-23)
(编辑 龙 亮)