

소퇴고환 · 병리학적 고찰

계명대학교 의과대학 비뇨기과학교실, 해부병리학교실* 및 의과학연구소

강주호 · 강유나* · 권건영* · 김광세

=Abstract=

Vanished Testis · A Histological Study

Joo Ho Kang, Yu Na Kang*, Gun Young Kwon* and Kwang Sae Kim

From the Departments of Urology, Pathology and Institute for Medical Science,
Keimyung University, School of Medicine, Taegu, Korea

Purpose: A histological study was undertaken to characterize the vanished testes in boys who had impalpable cryptorchidism and found to have nubbin remnant during last 9-years period.

Methods: Of 108 impalpable cryptorchid boys, 42(44 nubbins, 38.9%) were found to have vanished testes at exploration. **Results:** Thirty nine(88.6%) were located on the left side and the other 5(11.4%) were on the right side. The age range was 6 months to 14 years(mean;52.2 months). All 44 nubbin remnants were excised and examined microscopically. Grossly it was characterized by several centimeters of spermatic cord with small fibrotic tissue at distal end. Microscopically fibrous tissues were identified in all 44 specimens(100%), vasa deferens in 36(81.8%), epididymides in 19(43.2%), calcifications in 18(40.9%), hemosiderin deposits in 6(13.6%), germ cells in 5(11.4%), seminiferous tubules in 7(15.9%), tunicae albuginea in 7(15.9%) and hyalinizations in 3(6.8%).

Conclusions: The finding of scattered foci of calcifications, hemosiderin deposits and the presence of relatively normal spermatic cord and epididymis, supports the concept of in utero torsion of the testis as the etiology of vanished testis. The 11.4% incidence of viable germ cells warrants exploration and removal of remnant tissue in boys with a impalpable cryptorchidism.

Key Words: Vanished testes, Histology

서 론

소퇴고환은 일측성 또는 드물게는 양측성으로 고환 조직의 일부 또는 전부가 소실된 것을 말한다. 이는 주로 비촉지성 정류고환으로 외과적 개복술을 받는 도중에 진단되는데 그 빈도는 비촉지성 정류고환 환자의 3-20% 정도로 보고되고 있다¹. 이런 경우 부고환이나 정관의 혼적 조직들이 존재하는 경우도 있다. 하지만 고환의 소퇴현상 외에는 동반되는 다른 이상은 없으며 외형상 정상적인 남성인 경우가 대부분이다.² 이의 원인으로는 태생기초에 고환염전 등으로 인한

접수일자: 1996년 5월 9일

혈류차단이나 내분비학적 이상, 감염, 외상 등이 거론되어지고 있는데³ 과거에는 발생과정에서의 이상이나 모체의 mump나 매독등의 감염이 그 원인으로 생각되어졌으나 현재에는 임신 말기에 발생하는 혈류의 차단으로 인한 것으로 여겨지고 있다.

저자들은 소퇴고환을 가진 환자들로부터 얻어진 조직을 광학현미경으로 관찰함으로써 이 질환의 병인을 추정해보고 이를 토대로 하여 적절한 치료 방침을 수립하는데 도움을 얻고자 하였다.

대상 및 방법

저자들은 1987년부터 1996년까지 9년간 본과

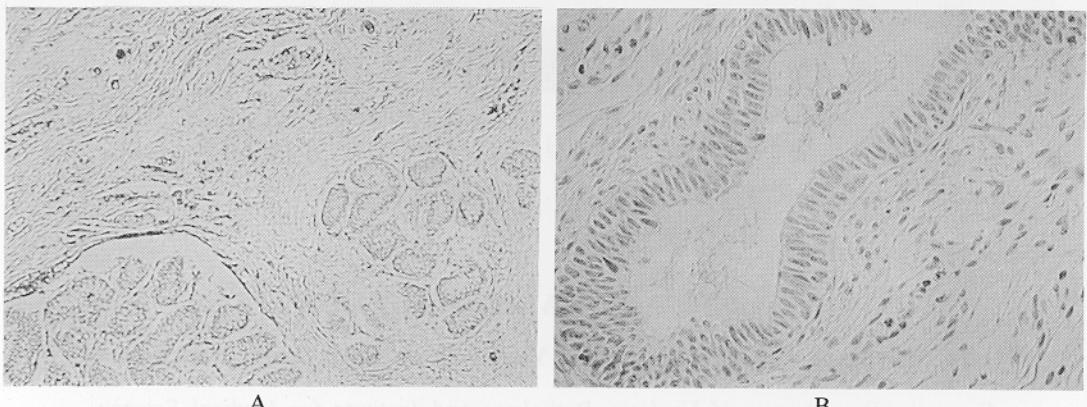


Figure A, low power light microscopic finding. It reveals heavy fibrosis, atrophied seminiferous tubules and hemosiderine deposits (H&E, X100). **B**, high power light microscopic finding. It shows a segment of seminiferous tubule in which a few germ cells exist (H&E, X400).

Table. Microscopic findings of 44 remnant testicles

Findings	No. Cases (%)
Fibrosis	44(100)
Vasa deferens	36(81.8)
Epididymides	19(43.2)
Calcifications	18(40.9)
Hemosiderin deposits	6(13.6)
Germ cells	5(11.4)
Seminiferous tubules	7(15.9)
Tunicae albuginea	7(15.9)
Hyalinizations	3(6.8)

에 입원하여 수술을 받은 비촉지성 정류고환 환자에 대한 병력기록지를 후향적으로 조사하였다. 전체 비촉지성 정류고환 환자는 108명이었고 이들중 42명(38.9%)이 소퇴고환으로 진단되었다. 이들의 나이는 최저 6개월에서 최고 14세 사이로 평균 52.2개월 이었다. 32명(76.1%)의 환자가 소아용 복강경검사를 받았고 그 결과 복강내에 고환은 없고 정관과 고환혈관이 내셔혜륜을 통과하는 것이 관찰되어 외과적 개복술을 받았다. 나머지 8명은 일차적으로 시험적 개복술을 받아 술장에서 고환혈관이나 정관의 맹단을 확인함으로써 소퇴고환으로 진단되었다. 이들중 2례는 양측성 소퇴고환 환자였고 40례는 일측성 소퇴고환 환자였다. 일측성 소퇴고환 환자중 37명이 좌측에 병변이 있어 우측 3 명에 비해 좌측이 92.5%로 우세하였다. 이들은 모두 잔류고환조직적출술을 받았으며 적출된 44개의 잔류고환조직은 광학현미경하 병리조직검사가 이루어졌었고, 한명의 병리의사에 의해 재검토 되어졌다.

결 과

2례의 양측성 소퇴고환을 보인 환자를 포함하여 전례에서 환자의 외성기는 모두 남성이었고 고환의 이상 외에 다른 이상소견은 없었다. 복강경 검사 및 외과적 개복술 결과 모든 경우에서 정관이나 고환혈관의 맹단부가 내셔혜륜 이하 부위에서 발견 되었다. 적출된 44개의 검체는 육안적 으로 3-4cm의 정삭조직 끝에 작고 팽만된 맹단을 이룬 형태로 관찰되었다. 광학현미경하에서는 모든 경우에서 섬유조직이 관찰 되었고, 정관조직은 36례(81.8%)에서, 부고환조직은 19(43.2%), 석회화는 18(40.9%), hemosiderin 색소침착은 6(13.6%), 고환초막조직은 7(15.9%), 그리고 유리질조직은 3(6.8%)에서 관찰되었다(Table). 그리고 정세포는 5(11.4%)에서 관찰되었으며 정세포 없이 세정관단 관찰된 경우가 7례(15.9%)였다(Figure).

고 안

소퇴고환(Vanishing Testis)이란 용어는 1969년 Scott 등에 의해 처음 기술되었는데 그들은 16명의 환자에서 고환조직이 없으면서 고환혈관과 정관이 맹관으로 끝나거나 부고환 혼적조직으로 연결되어 있는 형태적 특징을 지니고 있었다고 보고 하였다.²

1988년 본원에서 보고한 것에 의하면 272명(343고환)의 정류고환 환자중에서 비촉지성 정류고환은 52고환(15.2%)이었고, 이중에서 7례(13.5%)의 환자가 외과적 개복술 후에 소퇴고환으로 밝

혀졌다.⁴ Bourne등은 476례의 고환적출술 검체를 대상으로 한 보고에서 이중 77례(16.2%)가 소퇴고환이었다고 하였다.⁵ Caterino등은 1369례의 정류고환 환자를 대상으로 한 조사에서 비축지성 정류고환은 296례로 전체에서 20%를 차지하였고 이 중 외과적 개복술후 소퇴고환으로 진단 받은 경우가 104례(34.1%)였다고 보고 하였다.⁶ 이와같이 저자들에 따라서 다소의 차이는 있으나 소퇴고환의 빈도는 비축지성 정류고환 환자 중에서 3-20% 정도로 추정된다.¹

소퇴고환의 원인으로는 파거로부터 임신중 모체의 감염, 발달과정에서 내분비학적 이상 그리고 고환으로의 혈류감소로 인한 허혈성 변화 등이 거론되고 있다. 이중 내분비학적 이상과 혈류차단이 유력하다.⁷

내분비학적 이상을 주장하는 이들의 견해는 소퇴고환이 일종의 심한 형태의 정류고환이라는 것이다.⁷ Hedinger등은 1982년에 일측성 정류고환 환자에서 유낭내 정상위치에 있는 대측 고환의 조직검사 소견상 라이디히 세포(Leydig cell)와 정세포 수가 감소되어 있고 정자형성과정에 결함이 있었다고 보고하였다.⁸ 1988년에 Roger등은 정류고환 환자들은 혈중 황체형성 호르몬(Leutening Hormone)과 남성호르몬(Testosterone)의 수치가 정상 대조군에 비해 감소되어 있다고 보고하였다.⁹

소퇴고환의 경우 1991년 Duckett등의 보고에 의하면 정류고환 환자의 대측 고환과 소퇴고환 환자의 대측 고환을 비교해 보았을 때 소퇴고환 환자의 경우에서 라이디히 세포(Leydig cell)와 정세포 수가 많았으며 정자형성과정에 결함이 있는 경우도 적었고 따라서 소퇴고환은 내분비적 이상에 의한다기보다는 물리적인 원인에 의할 것이라고 추정하였다. 소퇴고환을 가진 대부분의 환자들은 외성기가 정상적인 남성이고 염색체 검사상에서도 46XY를 보인다. 본파에서 1993년에 보고한 양측성 고환 소퇴증후군 1례에서도 외성기가 고환을 제외하고는 모두 정상 남성이었으며 염색체검사에서도 46XY 였다.¹⁰ 이를 근거로 Jost등은 태생기의 발달 과정상에서 성분화가 일어나는 시기에서는 고환이 반드시 존재했을 것이고 따라서 물러씨 구조물들도 억제되었을 것이라고 가정하였다.¹¹

소퇴고환의 약 90%에서 잔류고환조직을 비롯한 정관 또는 고환혈관의 맹단이 외과적 개복술

상에서 내서혜륜 이하부위에서 관찰된다.^{12,13} 이러한 현상은 발달과정에서 아마도 고환이 존재하였고 또한 내서혜륜을 통과하여 하강하였을 것이라는 추정을 가능케 한다. 즉 정상적인 고환의 하강시기인 임신말기까지는 아마도 고환이 존재했을 것이라고 추정할 수 있겠다. 이에 대해 Scorer 등은 잔류고환조직에서 부고환이나 정관조직이 같이 존재하는 것과 대부분의 경우에서 내서혜륜 이하부위에서 관찰되는 사실에 기초하여 소퇴고환의 이상 즉 혈류차단과 같은 현상이 임신 말기 특히 마지막 1개월에 발생할 것이라 추정하였다.¹⁴

소퇴고환의 병리학적 소견을 보면, Bourne등이 1991년에 77례의 소퇴고환 검체의 광학현미경적 관찰을 하였는데 이들의 보고에 의하면 정관이 가장 자주 발견된 조직으로서 77례 중 61례(79%)에서 관찰되었으며 여기에 정관이나 부고환조직이 있는 경우를 합하면 64례(83%)에서 관찰되었다고 하였다.⁵ 특기할 사항은 이들 중 약 42%에서 석회화가 관찰되었고 12%에서는 hemosiderin과 같은 철색소가 발견되었다는 것이다. 이러한 점에서 그들은 소퇴고환이 임신 기간중이나 출생후의 어느 시기에선가 출혈을 동반한 혈류차단으로 인한 고환조직의 괴사로 인해 발생할 것이라고 추정하였다.^{5,7,15} 이와 더불어 혈류차단으로 인한 괴사가 병인론으로 여겨지는 근거 중의 하나가 소퇴고환이 다른 정류고환과는 달리 좌측에 더욱 많이 발생한다는 점이다. Bourne등은 소퇴고환 77례 중에서 좌측이 53례로 69%를 차지하였고 우측이 22례로 28%였고 양측성이 2례, 3%였다고 보고하였다.⁵ 이와달리 정류고환의 경우에는 1988년 본원의 보고에 의하면 전체 일측성 정류고환 201례 중 우측이 118례, 58.7%로 좌측 83례 41.3% 보다 통계적으로 의미있게 많았다.¹⁰

소퇴고환의 병인론과 더불어 또 하나의 논쟁점은 소퇴고환에서 잔류고환조직내에 정세포가 존재하는가 하는 것과 만약 존재한다면 이후에 암종으로 진행할 것인가 하는 것이다. Bloom등에 의하면 50례의 적출된 소퇴고환의 광학현미경적 관찰 결과 10%에서 정세포가 관찰되었고 이중 1례의 9세 환자의 잔류고환조직에서 정관내 정세포암을 발견하였다고 보고하였다.³ 저자들의 관찰에서도 11.4%의 빈도로 정세포가 관찰되었다. 저자들에 따라서 약간의 차이는 있으나 소퇴고환의 광학현미경적 관찰상에서 약 6-13% 정도에서 정세포가 관찰되고 있다.^{3,16,17} 그리고 아직까지는

소퇴고환의 잔류고환조직에서 암발생의 빈도에 대해서는 보고된 바가 없으나 정류고환의 경우에 미루어 보아 그 가능성은 배제할 수 없을 것이다. 따라서 소퇴고환의 잔류고환조직은 외과적 개복술로 제거하는 것이 좋을 것이라고 주장이 일반적이며 보고자에 따라서 술식에 있어서도 고환종양에 대한 근치적 고환 절제술과 같이 서해부로 접근하는 것을 권장하고 있다.³

결 론

소퇴고환은 비촉지성 정류고환을 지닌 환자의 38.9%에서 발견되어지는 드물지 않은 질환으로서 병리조직학적 검사상 석회화, hemosiderin 색소침착, 유리질 등이 관찰되고 부고환이나 정관 등이 정세포에 비해 비교적 자주 관찰되는 점 등으로 미루어 임신중의 고환염전등으로 인한 혈류차단에 의한 고환의 괴사로 인해 발생하는 것으로 추정할 수 있겠다. 또한 11.4%에서 정세포가 관찰되고 있어 암종 발생의 가능성을 고려하여 잔류고환적출술로 치료하는 것이 적절할 것으로 판단된다.

REFERENCES

- Wright JE. The atrophic testicular remnant. *Pediatr Surg Int* 1986; 1: 229-31.
- Abeyaratne MR, Aherne WA, Scott JE. The vanishing testis. *Lancet* 1969; 2: 822-3.
- Rozanski TA, Wojno KJ, Bloom DA. The remnant orchiectomy. *J Urol* 1996; 155: 712-4.
- 류동수, 김거환, 김광세. 양측성 고환 소퇴증 후군 1례. *대한비뇨기학지* 1993; 34: 733-6.
- Smith NM, Byard RW, Bourne AJ. Testicular regression syndrome-a pathological study of 77 cases. *Histopathology* 1991; 19: 269-72.
- Ferro F, Lais A, Bagolan P, Talamo M, Caterino S. Impact of primary surgical approach in the management of the impalpable testis. *Eur Urol* 1992; 22: 142-6.
- Huff DS, Wu HY, Snyder HM III, Hadziselimovic F, Blythe B, Duckett JW. Evidence in favor of the mechanical(intrauterine torsion) theory over the endocrinopathy(cryptorchidism) theory in the pathogenesis of testicular agenesis. *J Urol* 1991; 146: 630-1.
- Hedinger E. Histopathology of undescended testes. *Eur J Ped* 1982; 139: 266-71.
- Job JC, Toublanc JE, Chaussain JL, Roger M. Endocrine and immunological findings in cryptorchid infants. *Horm Res* 1988; 30(4-5): 167-72.
- 박재신, 김광세. 정류고환: 수술적 교정술 후 추적 관찰. *대한비뇨기학지* 1988; 29: 406-12.
- Jost A, Prepin J, Vigier B. Hormones in the morphogenesis of the genital system. *Birth Defect* 1977; 13: 85-7.
- Elder JS. Laparoscopy for impalpable testes: significance of the patent processus vaginalis. *J Urol* 1994; 152: 776-8.
- Plotzker ED, Rushton HG, Belman AB, Skoog SJ. Laparoscopy for nonpalpable testes in childhood: is inguinal exploration also necessary when vas and vessels exit the inguinal ring? *J Urol* 1992; 148: 635-7.
- Tosi SE, Morin LJ. The vanishing testis syndrome: Indications for conservative therapy. *J Urol* 1976; 115: 758-9.
- Honore LH. Unilateral anorchism. Report of 11 cases with discussion of etiology and pathogenesis. *Urology* 1978; 11: 251-4.
- Harris BH, Webb HW, Wilkinson AH Jr, Stevens PS. Protection of the solitary testis. *J Pediatr Surg* 1982; 17: 950-2.
- Turek PJ, Ewalt DH, Snyder HM III, Stampfers D, Blyth B, Huff DS, Duckett JW. The absent cryptorchid testis:surgical findings and their implications for diagnosis and etiology. *J Urol* 1994; 151: 718-20.