

https://doi.org/10.37800/RM.1.2024.96-102

УДК: 616.697

Clinical Case Клинический случай

Аспирационная биопсия яичка с целью получения сперматозоидов для преодоления мужского бесплодия с помощью ВРТ при синдроме Циннера: клинический случай

И.А. Корнеев^{1,2}, К.О. Самойлова¹

¹Первый Санкт-Петербургский государственный медицинский университет имени академика И.П. Павлова МЗ Российской Федерации, Санкт-Петербург, Россия;
²Международный центр репродуктивной медицины, Санкт-Петербург, Россия

АННОТАЦИЯ

Актуальность: Синдром Циннера – редкая врождённая аномалия развития урогенитального тракта у мужчин, характеризующаяся наличием кисты семенного пузырька, ипсилатеральной аплазией почки и ипсилатеральной обструкцией семявыносящего протока, которая может привести к бесплодию. Представления о путях преодоления проблемы бесплодия в рамках этой патологии противоречивы, поскольку устранение обструкции не всегда приводит к восстановлению способности к зачатию естественным путем. Это определяет необходимость поиска альтернативных методов помощи таким пациентам и представления всех клинических случаев успешного преодоления бесплодия у мужчин с синдромом Циннера.

Цель исследования — показать и проанализировать опыт преодоления бесплодия у пациента с синдромом Циннера при помощи чрескожной аспирационной биопсии яичка с последующим использованием сперматозоидов в программе вспомогательных репродуктивных технологий (ВРТ) с применением методики интрацитоплазматической инъекции сперматозоида (ИКСИ).

Материалы и методы: В исследовании использован метод ретроспективного анализа результатов обследования и лечения пациента, обратившегося в центр репродуктивной медицины для преодоления бесплодия в браке после оперативного лечения по поводу кисты семенного пузырька.

Результаты: В статье представлен клинический случай преодоления мужского бесплодия при синдроме Циннера с помощью ВРТ. Несмотря на проведенное пациенту лечение в виде резекции кисты семенных пузырьков, бесплодие сохранялось, в связи с чем была произведена биопсия яичка и оплодотворение яйцеклетки методом ИКСИ. После успешного культивирования произведен перенос эмбриона. У супруги пациента наступила клиническая беременность, завершившаяся рождением здорового ребёнка.

Заключение: Данный клинический случай демонстрирует возможности применения ВРТ и простых малоинвазивных методов получения сперматозоидов для успешного преодоления бесплодия без радикального оперативного лечения у больных, не имеющих других снижающих качество жизни симптомов. Увеличение числа наблюдений мужчин с синдромом Циннера в последние годы является предпосылкой для информирования об этой проблеме и путях ее преодоления широкого круга специалистов по репродуктивной медицине.

Ключевые слова: синдром Циннера, мужское бесплодие, вспомогательные репродуктивные технологии, врождённые аномалии, обструктивная азооспермия, необструктивная азооспермия.

Для цитирования: Корнеев И.А., Самойлова К.О. Аспирационная биопсия яичка с целью получения сперматозоидов для преодоления мужского бесплодия с помощью ВРТ при синдроме Циннера: клинический случай. *Репродуктивная медицина (Центральная Азия).* 2024;1:96-102. https://doi.org/10.37800/RM.1.2024.96-102

Testicular sperm aspiration to obtain sperm for overcoming male infertility in Zinner syndrome with ART: A clinical case

I.A. Korneyev^{1,2}, K.O. Samoylova¹

¹Academician I.P. Pavlov First St. Petersburg State Medical University of the RF Ministry of Healthcare, St. Petersburg, Russia; ²International center for reproductive medicine, St. Petersburg, Russia

ABSTRACT

Relevance: Zinner syndrome is a rare congenital anomaly of the male urogenital tract, characterized by the presence of a seminal vesicle cyst, a kidney ipsilateral aplasia, and ipsilateral ejaculatory duct obstruction, which can cause infertility. The ideas about the ways of overcoming the infertility problem within this pathology are contradictory because removing obstruction does not always lead to the restoration of the ability of natural conception. This case determines the need for alternative forms of treatment for the patients and representation of all successful cases of male fertility treatments with Zinner syndrome.



The study aimed to show and analyze the experience of overcoming Zinner syndrome infertility using percutaneous testicular sperm aspiration with subsequent use of sperm in Assisted Reproduction Technology program (ART) with the method of Intra Cytoplasmic Sperm Injection (ICSI).

Materials and Methods: The study uses the method of retrospective analysis of the examination and treatment results of the patient referred to the Centre for Reproductive Medicine to overcome male infertility in marriage after surgical treatment for the seminal vesicle cyst.

Results: The research represents a clinical case of overcoming male infertility with Zinner syndrome using ART. Despite the patient's treatment in the form of resection of the seminal vesicle cyst, the infertility persisted, which led to testicular biopsy and ICSI fertilization of the egg; the embryo was transferred after successful cultivation. A resulting clinical pregnancy in the patient's spouse led to the birth of a healthy child.

Conclusion: This clinical case demonstrates the possibility of using ART and justifying the use of minimally invasive methods of obtaining sperm to successfully overcome infertility without radical operative treatment in selected patients without any other quality-reducing symptoms. The increasing number of observations of men with Zinner syndrome in recent years is a prerequisite for informing a wide range of specialists in reproductive medicine about this problem and ways to overcome it.

Keywords: Zinner syndrome, male infertility, assisted reproductive technologies, congenital anomalies, obstructive azoospermia, non-obstructive azoospermia

How to cite: Korneyev IA, Samoylova KO. Testicular sperm aspiration to obtain sperm for overcoming male infertility in Zinner syndrome with ART: A clinical case. *Reproductive Medicine (Central Asia)*. 2024;1:96-102. https://doi.org/10.37800/RM.1.2024.96-102

ҚРТ қолдану арқылы Циннер синдромында ер бедеулігін жеңу үшін сперматозоидтарды алу үшін тестикулярлық аспирациялық биопсия: клиникалық жағдай

И.А. Корнеев^{1,2}, К.О. Самойлова¹

¹ Ресей федерациясы денсаулық сақтау министрлігінің Академик И.П. Павлов атындағы бірінші Санкт-Петербург мемлекеттік медицина университеті, Санкт-Петербург, Ресей;
²Международный центр репродуктивті медицины, Санкт-Петербург, Ресей

АНДАТПА

Өзектілігі: Циннер синдромы – ер адамдарда несеп-жыныс жолдарының сирек кездесетін туа біткен аномалиясы, ұрық көпіршігі кистасының болуымен, бүйректің аплазиясымен және қан тамырларының ипситеральды бітелуімен сипатталады, бұл бедеулікке әкелуі мүмкін. Осы патология аясында бедеулік мәселесін жеңу жолдары туралы идеялар қайшы келеді, өйткені кедергіні жою әрқашан табиғи жолмен жүкті болу қабілетін қалпына келтіруге әкелмейді. Бұл мұндай науқастарға көмек көрсетудің балама әдістерін іздеу және Циннер синдромы бар ерлерде бедеулікті сәтті жеңудің барлық клиникалық жағдайларын ұсыну қажеттілігін анықтайды.

Зерттеудің мақсаты – интрацитоплазмалық сперматозоидты инъекция (ICSI) әдісімен қосалқы репродуктивті технология (ҚРТ) бағдарламасында сперматозоидты кейіннен қолдану арқылы тері арқылы тестикулярлық аспирациялық биопсияның көмегімен Циннер синдромы бар науқаста бедеулікті жеңу тәжірибесін көрсету және талдау.

Материалдар мен әдістері: Зерттеу барысында ұрық көпіршігі кистасын хирургиялық емдеуден кейін некелік бедеулікті жеңу мақсатында репродуктивті медицина орталығына жүгінген науқасты тексеру және емдеу нәтижелеріне ретроспективті талдау әдісі қолданылды.

Нэтижелері: Мақалада ҚРТ көмегімен Циннер синдромындағы ер бедеулігін жеңудің клиникалық жағдайы ұсынылған. Науқасқа тұқымдық көпіршік кистасының резекциясы түрінде көрсетілген емге қарамастан, бедеулік сақталды, сондықтан ICSI әдісімен аталық биопсия жасалды және жұмыртқа ұрықтандырылды; сәтті өсіруден кейін эмбрионды ауыстыру жасалды; науқастың әйелі клиникалық жүкті, нәтижесінде дені сау бала дүниеге келеді.

Қорытынды: Бұл клиникалық жағдай өмір сүру сапасын төмендететін басқа белгілері жоқ таңдалған пациенттерде радикалды хирургиялық емдеусіз бедеулікті сәтті жеңу үшін АТР қолдану мүмкіндігін көрсетеді және сперматозоидтарды алудың қарапайым, аз инвазивті әдістерін қолдануды негіздейді. Соңғы жылдары Зиннер синдромы бар ерлердің бақылауларының көбеюі репродуктивті медицинаның кең ауқымды мамандарын осы мәселе және оны жеңу жолдары туралы ақпараттандырудың алғышарты болып табылады.

Түйінді сөздер: Циннер синдромы, ер бедеулігі, қосалқы репродуктивті технологиялар, туа біткен аномалиялар, обструктивті азооспермия, обструктивті емес азооспермия.

Введение: По данным ВОЗ, с проблемой мужского бесплодия в течение жизни сталкиваются от 8,2% до 21,8% мужчин, при этом у 7-11% пациентов оно обусловлено азооспермией вследствие претестикулярных, тестикулярных и посттестикулярных причин [1-3]. До 60% таких случаев связаны с азооспермией необструктивного генеза, обусловленной первичной тестикулярной недостаточностью, однако отсутствие сперматозоидов в эякуляте может быть и следствием врожденного нарушения проходимости семявыносящих путей, которое, в частности, наблюдается при двусторонней агенезии vas deferens, кистах предстательной железы, а также при значительно более редко встречающемся синдроме Циннера [4].

Название синдрома связано с именем А. Циннера, впервые в 1914 году описавшего эту аномалию, при которой на 4-13 неделях гестационного развития происходит нарушение формирования Вольфова протока, приводящее к аплазии или гипоплазии почки и ипсилатеральной обструкции эякуляторного протока, которая, в свою очередь, способствуют последующему образованию кисты семенного пузырька и нарушению проходимости семявыносящих путей. Это крайне редко встречающееся заболевание; в мире опубликованы работы, описывающие немногим более 200 случаев из практики, большинство из них приходятся на период с 2000 года по настоящее время, что, вероятно, можно объяснить все более широким внедрением методов аппаратной диагностики [5-9].

Клиническая картина синдрома Циннера, как следует из анализа опубликованных данных, неспецифична: пациенты обычно жалуются на различные расстройства мочеиспускания, а также рецидивирующие, связанные и не связанные с копулятивной активностью, тазовые боли. В ряде случаев болезнь протекает бессимптомно и выявляется лишь на этапе диагностики по поводу бесплодия в браке, которое при этом синдроме выявляют у до 45% мужчин, или других заболеваний и состояний, в том числе относящихся к педиатрической практике [6, 10]. Диагноз подтверждают данными исследований, таких как УЗИ, КТ и МРТ, позволяющих получить изображения строения органов мочевыделительной и мужской половой систем, на которых определяются отсутствие одной из почек и признаки содержащего жидкость образования, связанного с семявыносящим протоком и/или семенным пузырьком. При этом заболевании показатели работы гипоталамо-гипофизарно-гонадной системы обычно остаются в границах нормальных значений; в ряде случаев, при объективном и ультразвуковом исследованиях, могут быть обнаружены признаки, характерные для обструкции семявыносящих путей. Показатели эякулята вариабельны, при этом, как свидетельствуют данные обзора литературы, доля неподвижных сперматозоидов колеблется от 59,5 до 100% (медиана \pm SD этого показателя составили 90±18,35) [5].

При появлении жалоб на боль и дизурию пациентам с синдромом Циннера обычно успешно проводят симптоматическую консервативную терапию, а при отсутствии эффекта – хирургическое лечение с удалением кисты, которое в последние годы стали выполнять с использованием как эндоскопической, так и лапароскопической, а также робот-ассистированной техники [11, 12]. Такие оперативные вмешательства также предполагают устранение обструкции семявыносящих путей и последующее восстановление фертильности. Однако практика показала, что иссечение кисты семявыносящего протока не во всех случаях приводит к нормализации показателей эякулята, так как зачатию естественным путем после восстановления проходимости может препятствовать угнетение сперматогенеза, обусловленное предшествующей длительной обструкцией. Результаты постхирургического гистопатологического исследования биоптатов яичек мужчин с синдромом Циннера демонстрируют вариабельность гистологического строения фрагментов удаленной ткани, содержащих как зоны с нормальным строением, так и

участки гипосперматогенеза различной степени выраженности [13]. Таким пациентам для преодоления бесплодия требуется применение вспомогательных репродуктивных технологий (ВРТ), при этом в протоколе лечения могут быть использованы не только сперматозоиды эякулята, но также и сперматозоиды яичек, полученные хирургическим путем и имеющие более низкие показатели фрагментации ДНК [14]. Таким образом, в настоящее время пациенту с бесплодием, обусловленным синдромом Циннера, может быть предложен выбор тактики лечения, направленный как на устранение причины бесплодия путем оперативного вмешательства, так и на преодоление бесплодия путем применения ВРТ, в том числе и после неудачных попыток хирургического лечения. Решение в пользу одного или другого подхода принимается в зависимости от индивидуальных особенностей клинической картины болезни и предпочтений пациента, что требует надлежащего информационного сопровождения со стороны врача.

Низкая распространенность синдрома Циннера диктует необходимость представления всех случаев наблюдения и успешного лечения врачам, специализирующимся на репродуктивной медицине. С этой целью приводим собственное клиническое наблюдение.

Цель исследования — показать и проанализировать опыт преодоления бесплодия у пациента с синдромом Циннера при помощи чрескожной аспирационной биопсии яичка с последующим использованием сперматозоидов в программе вспомогательных репродуктивных технологий (ВРТ) с методикой интрацитоплазматической инъекции сперматозоида (ИКСИ).

Материалы и методы: В нашем исследовании использован метод ретроспективного анализа результатов обследования и успешного лечения пациента 34 лет с применением аспирационной биопсии яичка с целью преодоления мужского бесплодия при синдроме Циннера с помощью ВРТ.

Далее приводим описание клинического случая.

Информация о пациенте:

Пациент М., 1988 г.р., 34 лет, обратился в Международный центр репродуктивной медицины (МЦРМ), г. Санкт-Петербург, в связи с жалобами на невозможность зачатия естественным путем, при регулярной половой жизни без контрацепции с супругой в течение 3 лет.

Диагностика: До обращения в МЦРМ мужчина прошел обследование по поводу бесплодия. Была выявлена криптозооспермия — единичные подвижные и неподвижные сперматозоиды в эякуляте, повышение уровней ФСГ (20,4), ЛГ (15,1) при нормальном уровне тестостерона, нормальный мужской кариотип (46 ХҮ), отсутствие делеций локусов АZF Y-хромосомы и мутаций гена СFTR. При сборе анамнеза также было установлено, что пациент в подростковом возрасте перенес травму правого яичка, после которой оно уменьшилось в объеме до 1 мл, что было подтверждено представленными данными ультразвукового исследования. УЗ-признаков гипоплазии, обструкции геte testes, неоднородности структуры или изменения эхогенности контралатерального яичка, а также изменений придатка яичка и семенного канатика не обнаружено.

Кроме того, при опросе было выяснено, что на протяжении длительного времени пациенту неоднократно, в том числе и до вступления в брак, проводили курсы антибактериальной терапии по поводу хронического простатита, проявлявшегося периодически усиливающимися жалобами на вялую струю мочи и боли в надлобковой области. За два года до обращения в МЦРМ, в связи с очередным обострением, был обследован, выполнены КТ органов брюшной полости, забрюшинного пространства и малого таза и ТРУЗИ, при этом выявлены аплазия левой почки и характерное для кисты образование в малом тазу в проекции ипсилатерального семенного пузырька, что позволило диагностировать синдром Циннера (рисунки 1, 2).



Рисунок 1 — Мультиспиральная компьютерная томография органов брюшной полости и органов малого таза. Аксиальная проекция: а — КТ-признаки агенезии левой почки, b — КТ-признаки кисты левого семенного пузырька 7.4 х 8.1 х 6.6 см

Figure 1 – Multislice computed tomography of the abdominal and pelvic organs.

Axial projection: a — CT signs of agenesis of the left kidney, b — CT signs of a cyst of the left seminal vesicle 7.4 x 8.1 x 6.6 cm



Рисунок 2 — Ультразвуковое исследование органов малого таза. УЗ-признаки анэхогенного образования в малом тазу 7.2 х 7.2 х 6.9 см

Figure 2 – Ultrasound examination of the pelvic organs.
Ultrasound signs of an anechoic
formation in the pelvis 7.2 x 7.2 x 6.9 cm

С целью снижения интенсивности болей и предотвращения очередного рецидивирования клинических проявлений болезни в урологическом стационаре было лапароскопическим доступом произведено иссечение кисты, которая в ходе ревизии была визуализирована как округлое, покрытое брюшиной и связанное с семявыносящими протоками образование, расположенное под мочевым пузырем, с исходом в малый таз, и компримирующее кишку. Послеоперационный период протекал гладко, пациент отметил существенное улучшение состояния и исчезновение беспокоящих симптомов, однако ни в одном из последующих исследований не были выявлены сперматозоиды в эякуляте, что позволило поставить диагноз «Мужское бесплодие».

Объективные данные: пациент нормостенического телосложения, с ИМТ 27,76 (избыточная масса тела), удовлетворительного питания. Кожные покровы чистые, бледно-розовые. Состояние удовлетворительное. Подкожно-жировая клетчатка развита умеренно. Живот мягкий, безболезненный во всех отделах. Почки не пальпируются, симптом поколачивания по пояснице отрицательный с обеих сторон.

Генитальный статус: Наружные половые органы — мошонка развита правильно. Кожа мошонки пигментирована, покрыта редкими волосами. По средней линии определяется шов. Оба яичка пальпируются в мошонке. Размер яичек — правого 1 мл, левого 25 мл. Консистенция яичек упруго эластичная, спаянность с мошонкой отсутствует, пальпация безболезненна.

Лечение: На основании жалоб, данных анамнеза и проведенного обследования сложилось и было обсуждено с мужчиной представление о том, что у него, на фоне обусловленной синдромом Циннера аномалии развития, а также полученного в детстве травматического повреждения яичка и перенесенного оперативного вмешательства, наблюдается значительное снижение репродуктивной функции, не позволяющее рассчитывать на зачатие естественным путем. Было получено информированное согласие на лечение бесплодия с помощью ВРТ и использованием сперматозоидов, полученных при биопсии яичка. Супруга пациента, в целом здоровая женщина 35 лет, была направлена к гинекологу. По результатам ее обследования не было выявлено снижающих репродуктивную функцию гинекологических заболеваний, а также противопоказаний и ограничений к рекомендованному урологом лечению. Супружеская пара была консультирована врачом-генетиком, по мнению которого, несмотря на отсутствие признаков стигматизации, с учетом заболевания мужа и позднего репродуктивного возраста жены, вследствие повышенного риска образования эмбрионов с хромосомной аномалией, рекомендовано провести в ходе лечения с применением ВРТ преимплантационное генетическое тестирование эмбрионов на хромосомные аномалии (ПГТ-А) методом секвенирования нового поколения, с дальнейшим переносом эмбрионов в криоцикле.

Начат цикл лечения с применением ВРТ. Овариальная стимуляция суперовуляции произведена с применением пурегона, оргалутрана и овитреля; на 16-й день цикла пунктировано 18 фолликулов, получено 16 ооцитов (15МП и 1МІ). Мужчине под внутривенным наркозом была произведена чрескожная мультифокальная аспирационная биопсия левого яичка по методике L. Levine и E. Lisek в собственной модификации [15].

При последующей микроскопии биоптатов в условиях лаборатории ВРТ выявлены единичные неподвижные и подвижные сперматозоиды. Произведено интрацитоплазматическое введение сперматозоидов (ИКСИ) в ооциты МІІ, получено 12 эмбрионов, из которых пять (ВІ4аа, ВІ4аb, ВІ4аb, ВІ4bb и ВІ1) продолжали развитие на 5-й день культивирования.



Результаты: Выполнен перенос одного эмбриона GR1. При последующем УЗИ диагностирована клиническая беременность (1 плодное яйцо), которая протекала нормально и закончилась самопроизвольными своевременными родами без осложнений, родилась девочка с массой 3290 г, ростом 50 см, ребенок здоров.

Оставшиеся 4 эмбриона криоконсервированы в 4 крионосителях. Выполнено ПГТ-А одного эмбриона Bl4ab на 24 хромосомы, при этом не выявлено отклонений по числу хромосом, эмбрион был рекомендован к криопереносу. Временная шкала клинического случая представлена в Таблице 1.

Таблица 1 – Временная шкала клинического случая

1-й визит: 16.11.2022	Пациент М., обратился за консультацией в Международный центр репродуктивной медицины с жалобами на невозможность зачатия естественным путем при регулярной половой жизни без контрацепции с супругой в течение 3 лет. С учётом жалоб, анамнеза, данных объективного осмотра, лабораторных и инструментальных исследований выставлен диагноз: Мужское бесплодие. Врождённые аномалии мужских половых органов. Синдром Циннера. Состояние после иссечения кисты семявыносящих протоков от 12.2021. Посттравматическая атрофия правого яичка. Рекомендовано лечение при помощи методов ВРТ (ЭКО+ИКСИ) после консультации супруги у гинеколога-репродуктолога с использованием сперматозоидов, полученных при аспирационной биопсии придатка левого яичка/левого яичка. Назначен комплекс лабораторно-инструментальных исследований перед хирургическим вмешательством и консультация анестезиолога.
2-й визит: 08.12.2022	Проведена оценка результатов лабораторно-инструментальных исследований, заключения анестезиолога — противопоказаний к вмешательству не выявлено. По результатам консультации супруги гинекологом-репродуктологом снижающих репродуктивную функцию гинекологических заболеваний, противопоказаний и ограничений к рекомендованному урологом лечению не обнаружено. Начат цикл лечения с применением ВРТ.
21.12.2022	Пациенту проведена чрескожная аспирационная биопсия верхнего полюса, нижнего полюса и среднего сегмента левого яичка — получены единичные подвижные сперматозоиды, пригодные для ВРТ. Выписан домой в удовлетворительном состоянии.
26.12.2022	В рамках протокола ВРТ выполнен перенос одного эмбриона GR1
09.01.2023	Клиническая беременность
12.09.2023	Рождение ребенка: девочка, масса тела 3290 г., рост 50 см. Ребёнок здоров.

Table 1 – Clinical Case Timeline

1st visit: November 16, 2022	Patient M. sought consultation at the International Center for Reproductive Medicine with complaints of the impossibility of conceiving naturally with regular sexual intercourse without contraception with his wife for 3 years. According to the complaints, anamnesis, objective examination data, and laboratory and instrumental studies, the diagnosis was made: Male infertility. Congenital anomalies of the male genital organs. Zinner's syndrome. Condition after excision of the vas deferens cyst from 12/2021. Post-traumatic atrophy of the right testicle. Treatment using ART methods (IVF + ICSI) was recommended after the wife's consultation with a gynecologist-reproductologist using sperm obtained during an aspiration biopsy of the left testicular appendage/left testicle. A series of laboratory and instrumental studies were prescribed before the surgical intervention and a consultation with an anesthesiologist.
2nd visit: December 8, 2022	The results of laboratory and instrumental studies and the conclusion of the anesthesiologist were assessed – no contraindications to the intervention were found. Based on the results of the wife's consultation by the gynecologist-reproductologist, gynecological diseases that reduce reproductive function, contraindications and restrictions to the treatment recommended by the urologist were not found. A treatment cycle using ART was started.
December 21, 2022	The patient underwent a percutaneous aspiration biopsy of the upper pole, lower pole, and middle segment of the left testicle - single motile spermatozoa suitable for ART were obtained. He was discharged home in a satisfactory condition.
December 26, 2022	As part of the ART protocol, one GR1 embryo was transferred
January, 9, 2023	Clinical pregnancy
September, 12, 2023	Birth of a child: girl, body weight 3290 g, height 50 cm. The child is healthy.

Обсуждение: Синдром Циннера – редко встречающееся заболевание мужчин, которое может осложниться бесплодием вследствие нарушения проходимости семявыносящих путей и развития обструктивной азооспермии.

Патогенетически обоснованным, но инвазивным подходом к преодолению бесплодия у этой категории пациентов является удаление хирургическим путем

расположенной в тазу кисты с целью восстановления проходимости эякуляторных протоков и возможности зачатия естественным путем. Успешный опыт применения ИКСИ позволил рассматривать лечение с использованием сперматозоидов эякулята или сперматозоидов придатков яичек или яичек, полученных хирургическим путем в комбинации с ВРТ в качестве альтернативного



подхода у мужчин с синдромом Циннера, единственным беспокоящим клиническим проявлением которого является бесплодие. Подтверждением этого является описанный нами случай из практики, который свидетельствует, что не у всех мужчин с этим заболеванием устранение обструкции приводит к восстановлению способности к зачатию естественным путем, так как имеющиеся у них нарушения сперматогенеза — как обусловленные длительно протекающей обструкцией семявыносящих путей, так и не связанные с обструкцией, — вероятно, могут быть необратимыми, о чём ранее писали и другие специалисты [16].

Таким образом, единственным возможным путем преодоления бесплодия у таких мужчин является применение ИКСИ в программе ВРТ. В связи с этим мы считаем целесообразным рекомендовать принятие решения о проведении оперативного лечения с целью восстановления проходимости семявыносящих путей при синдроме Циннера лишь после получения информации о состоянии сперматогенного эпителия согласно результатам постхирургического гистопатологического исследования.

С нашей точки зрения, с целью получения сперматозоидов для ИКСИ у мужчин с синдромом Циннера можно всегда первично использовать малоинвазивные и редко приводящие к послеоперационным осложнениям чрескожные аспирационные биопсии органов мошонки, которые продемонстрировали 100% эффективность при экскреторном бесплодии и позволяют получить представление о зонах с сохраненным сперматогенезом в яичках при необструктивной азооспермии. Однако при этом также следует предусмотреть возможность конверсии в открытую операцию и, в случаях тяжелого нарушения сперматогенеза, когда в полученном при аспирации материале не будут обнаружены сперматозоиды, производить биопсию яичка с микрохирургическим контролем, позволяющим отобрать для экстракции и отправки в лабораторию ВРТ ткань яичка с канальцами, не имеющими визуально определяющихся признаков атрофии.

Заключение: Синдром Циннера — редко встречающееся заболевание, которое может осложниться мужским бесплодием. Представленный случай из практики демонстрирует возможности применения ВРТ и обоснования применения малоинвазивных методов получения сперматозоидов для успешного преодоления бесплодия без радикального оперативного лечения у отобранных больных, не имеющих других, снижающих качество жизни симптомов. Наметившаяся в последние годы тенденция к увеличению числа наблюдения мужчин с синдромом Циннера является предпосылкой для информирования об этой проблеме и путях ее преодоления широкого круга специалистов по репродуктивной медицине.

Получено/Received/Жіберілді: 29.01.2024 Одобрено/Approved/Мақұлданған: 06.03.2024

Опубликовано на сайте/Published online/Сайтта жарияланған: 01.04.2024

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ/REFERENCES

- World Health Organization. Infertility prevalence estimates, 1990–2021 [Internet]. Updated: 2023 April 03; cited 2024 January 29. https://www.who.int/publications/i/item/978920068315
- Nieschlag E, Hermann M, Behre, Nieschlag S. Andrology: male reproductive health and dysfunction. 3rd edition. Heidelberg: Springer Science and Business Media, 2010. 629 p. https://www.academia.edu/30959932/Andrology_Male_Reproductive_Health_and_Dysfunction_3rd_ed
- Корнеев И.А. Сравнительная характеристика параметров эякулята мужчин, обратившихся в центр репродуктивной медицины с 2016 по 2022 г. Урологические ведомости. 2023;1:23-29.
 Korneev IA. Comparative characteristics of ejaculate parameters of men who applied to the center for reproductive medicine from 2016 to 2022. Urologicheskie vedomosti. 2023;1:23-29. (In Russ.) https://doi.org/10.17816/uroved296569
- Sharma M, Leslie SW. Azoospermia. StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2024 Jan. Bookshelf ID: NBK578191. November 18, 2023. https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK578191/
- 5. Tianzhu L, Xiaodan L, Lesheng H, Hongyi L, Kaili C, Jinghua J, Nianli C, Wanchun Z, Jiahui T, Meng Z, Dan Z, Jingzhi Y, Chengfeng Z, Tao H, Bo L, Yongsong Y, Jun C. Zinner syndrome: an updated pooled analysis based on 214 cases from 1999 to 2020: systematic review. *Ann Palliat Med.* 2021;10(2):2271-2282. https://doi.org/10.21037/apm-20-1997
- 6. Kumar S, Illangovan KG, Khalil-Khan A, Arul Pitchai ADP, Sathiamoorthy R, Raju E. Zinner Syndrome. *Cureus*. 2022;14(11):e3130. https://doi.org/10.7759%2Fcureus.31308
- Zhengsheng L, Chaohao M, Xuan Z, Jinchun X. Zinner syndrome: Cases report and review of the literature. *Asian J Surg.* 2021;44(2):523-524. https://doi.org/10.1016/j.asjsur.2020.12.004
- 8. Cerruto MA, Diminutto A, Tafuri A, Porcaro AB, Balzaro M, Siracusano S, Artibani W. Asymptomatic Zinner's Syndrome Diagnosed during the Sixth Decade of Life: Case Report and Review of the Literature. *J Anesth Surg.* 2017;4(2):97-99. http://dx.doi.org/10.15436/2377-1364.17.090
- 9. Васильев А.О., Говоров А.В., Колонтарев К.Б., Куприянов Ю.А., Пушкарь Д.Ю. Опыт лечения пациентов с синдромом Циннера. *Проблемы репродукции*. 2014;2:72-77. Vasil'ev AO, Govorov AV, Kolontarev KB, Kupriyanov YuA, Pushkar' DYu. Experience in treating patients with Zinner syndrome. *Problemy reprodukcii*. 2014;2:72-77. (In Russ). https://www.mediasphera.ru/issues/problemy-reproduktsii/2014/2/031025-72172014215?lang=ru
- Cascini V, Di Renzo D, Guerriero V, Lauriti G, Lelli Chiesa P. Zinner Syndrome in Pediatric Age: Issues in the Diagnosis and Treatment of a Rare Malformation Complex. Front Pediatr. 2019;7:129. https://doi.org/10.3389/fped.2019.00129



- 11. Зубков А.Ю, Антонов Н.А. Клинический случай синдрома Циннера. *Практическая медицина*. 2018;1(112):161-162. Zubkov AYu, Antonov NA. A clinical case of Zinner Syndrome. *Practical medicine*. 2018;1(112):161-162. (in Russ). https://cyberleninka.ru/article/n/klinicheskiy-sluchay-sindroma-tsinnera
- Altobelli E, Bove AM, Falavolti C. Robotic-assisted laparoscopic approach in the treatment for Zinner's Syndrome associated with ipsilateral megaureter and in-complete double-crossed ectopic ureter. *Int Urol Nephrol.* 2013;45(3):635-638. https://doi.org/10.1007/s11255-013-0412-4
- 13. Cito G, Sforza S, Gemma L, Cocci A, Di Maida F, Dabizzi S, Natali A, Minervini A, Carini M, Masieri L. Infertility case presentation in Zinner syndrome: Can a long-lasting seminal tract obstruction cause secretory testicular injury? *Andrologia*. 2019;51(11):e13436. https://doi.org/10.1111/and.13436
- Cito G, Gemma L, Giachini C, Micelli E, Cocci A, Fucci R, Picone R, Sforza S, Nesi G, Santi R, Minervini A, Masieri L, Carini M, Coccia ME, Natali A. Sperm retrival by conventional testicular sperm extraction for assisted reproduction in patients with Zinner syndrome. Clin Exp Reprod Med. 2021;48(1):85-90. https://doi.org/10.5653/cerm.2020.03769
- 15. Корсак В.С., Корнеев И.А., Исакова Э.В. Руководство по вспомогательным репродуктивным технологиям для врачей. 3-е издание / Под ред. В.С. Корсака М.: Издательство «Медиа Сфера», 2023. 256 р. Korsak VS, Korneev IA, Isakova EV. Guide to assisted reproductive technologies for doctors. 3rd edition. In: Korsak VS, editor. M.: «Media sphere»; 2023;256. (in Russ.).
- Hofmann A, Vauth F, Roesch WH. Zinner syndrome and infertility: a literature review based on a clinical case. *Int J Impot Res.* 2021;33(2):191-195. https://doi.org/10.1038/s41443-020-00360-0

Информация об авторах:

Корнеев И.А. – доктор медицинских наук, профессор кафедры урологии с клиникой урологии, Первый Санкт- Петербургский государственный медицинский университет имени академика И.П. Павлова, Санкт-Петербург, Россия; Медицинский директор, Международный центр репродуктивной медицины, Санкт-Петербург, Россия, тел. +79219207005, e-mail: 78430@mail.ru, iakorneyev@yandex.ru, ORCID: http://orcid.org/0000-0001-7347-1901;

Самойлова К.О. (корреспондирующий автор) — студентка 6 курса, Первый Санкт-Петербургский государственный медицинский университет имени академика И.П. Павлова, Санкт-Петербург, Россия, тел. +79110014617, e-mail: 2422962@mail.ru, ORCID: https://orcid.org/0009-0007-8736-6003.

Вклад авторов:

Разработка концепции, Административное руководство исследовательским проектом, Написание рукописи – рецензирование и редактирование – Корнеев И.А., Самойлова К.О.

Проведение исследования – Корнеев И.А., Самойлова К.О.

Валидация результатов – Корнеев И.А., Самойлова К.О.

Написание черновика рукописи – Корнеев И.А., Самойлова К.О.

Финансирование: Авторы заявляют об отсутствии финансирования.

Конфликт интересов: Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Прозрачность исследования: Авторы несут полную ответственность за содержание данной статьи.

Information about the authors:

I.A. Korneyev – Doctor of Medical Sciences, Professor of the Urology Department with the Clinic of Urology, Academician I.P. Pavlov First St. Petersburg State Medical University of the RF Ministry of Healthcare; Chief Medical Officer, International Center for Reproductive Medicine, St. Petersburg, Russia, tel. +79219207005, e-mail: 78430@mail.ru, iakorneyev@yandex.ru, ORCID: http://orcid.org/0000-0001-7347-1901:

K.O. Samoilova (corresponding author) – 6th-year student, Academician I.P. Pavlov First St. Petersburg State Medical University of the RF Ministry of Healthcare, St. Petersburg, Russia, tel. +79110014617, e-mail: 2422962@mail.ru, ORCID: https://orcid.org/0009-0007-8736-6003.

Authors Contribution:

Conceptualization, Project Administration, Writing - Review & Editing - I.A. Korneyev, K.O. Samoilova

Investigation – I.A. Korneyev, K.O. Samoilova

Validation – I.A. Korneyev, K.O.Samoilova

Writing - Original Draft Preparation - I.A. Korneyev, K.O. Samoilova

Financing: Authors declare no financing of the study.

Conflict of interest: Authors declare no conflict of interest.

Transparency of the study: All authors take full responsibility for the content of this manuscript.