

両側三重尿管の1例

高岡市民病院泌尿器科 (部長: 江尻 進)

庄田 良中・江尻 進

高岡市民病院小児科 (医長: 和田直樹)

藤田 孝子・和田 直樹

A CASE OF BILATERAL URETERAL TRIPLICATION

Ryochu SHODA and Susumu EJIRI

*From the Department of Urology, Takaoka Municipal Hospital**(Chief: S. Ejiri M.D.)*

Takako FUJITA and Naoki WADA

*From the Department of Pediatrics, Takaoka Municipal Hospital**(Chief: N. Wada M.D.)*

Ureteral triPLICATION is a rare congenital anomaly of the urinary tract, although ureteral duplication is rather common. Bilateral ureteral triPLICATIONs are even rare anomalies.

A five-year-old girl with a history of urinary tract infection and episodes of fever and lower abdominal pain was admitted to our hospital for further examination of microscopic hematuria. An excretory urogram (IVP) revealed bilateral 3 pelves and ureters, and cystoscopic examination showed 2 ureteral orifices on each side. Both sides of bilateral ureteral triPLICATIONs in our case belonged to type B of Smith's classification.

Ureteral triPLICATION was first reported by Wraný in 1870. Since then 84 cases have been reported and among them 3 cases had bilateral ureteral triPLICATIONs. In this article, the classification and the development of ureteral triPLICATION are reviewed briefly.

Key words: Bilateral ureteral triPLICATION, Anomaly of the urinary tract

緒 言

重複尿管は日常比較的頻繁に経験する尿路奇形であるが、三重尿管はまれなものとされている。今回、われわれは尿路感染にともなう発熱と下腹部痛を主訴とする両側三重尿管症例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 5歳2カ月, 女児
初診: 1983年11月15日
主訴: 発熱, 下腹部痛
家族歴: 特記すべきことなし
既往歴: 満期正常分娩で生下時体重 3,250g. 尿失禁や夜尿症もなく, 尿路感染の指摘も今回が初めてで

ある。鎖肛やそのほかの奇形の既往もない。

現病歴: 1983年11月7日, 発熱と下腹部痛のため近医を受診し, 腎盂腎炎の診断にて化学療法を受けた。発熱, 下腹部痛および尿路感染は消失したが, 顕微鏡的血尿が持続するため11月9日当院小児科を紹介され, 精査のため入院した。IVPにて腎盂尿管の異常が認められたため11月15日当科を紹介された。

入院時(小児科)現症: 発育, 栄養は良好。胸部, 腹部に理学的異常所見を認めず。

入院時検査成績: 末梢血, 血液生化学所見: 赤沈1時間値 78 mm, CRP 4 (+). 尿所見: 蛋白 (+). 沈渣; 白血球 5~6/F, 赤血球 8~10/F, 細菌 (-). 尿培養; 陰性。

レ線検査所見: 腹部単純撮影では結石などの異常所見は認められず, 排泄性腎盂造影 (IVP) で腎機能に

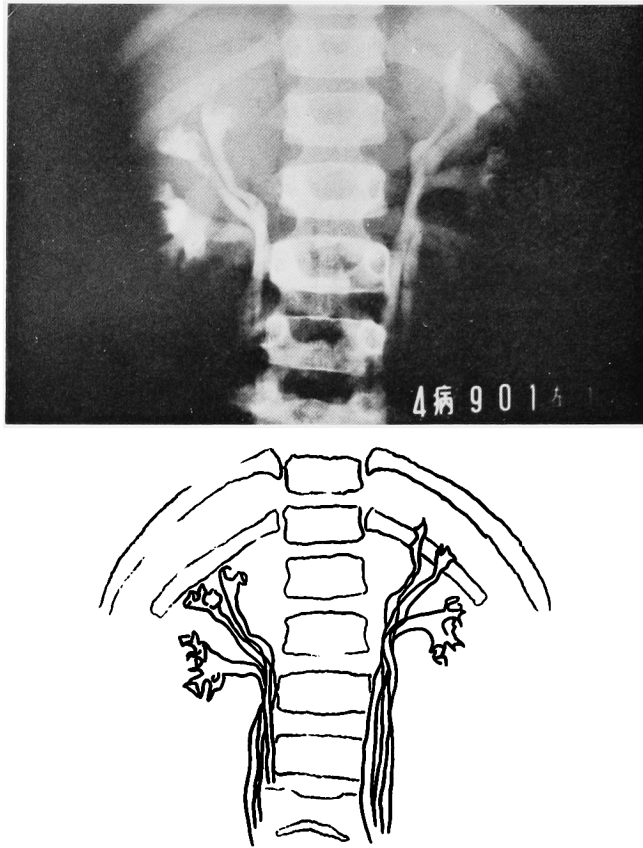


Fig. 1. 排泄性腎盂造影 (IVP) とそのシェーマ

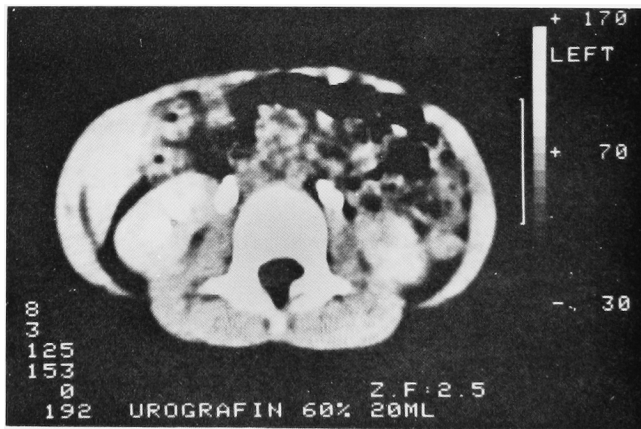


Fig. 2. 腹部 CT スキャン

異常は認めないが、両側とも3個の腎盂および3本の尿管が確認された (Fig. 1)。腎および尿管部の CT スキャンでも両側とも多重尿管を示唆する分節像を認めた (Fig. 2)。また、IVP、DIP および CT スキャン所見からは異所開口を疑わせる尿管の走行異常は

認められなかった。膀胱造影では両側とも VUR は認められなかった。

膀胱鏡検査所見：両側にそれぞれ2個の尿管口が認められたが、それらの形態や収縮蠕動は正常で、三角部形成および膀胱粘膜にも異常は認められなかった。

Table 1. 三重尿管本邦報告例

1) 小 児 例

№	報告者	報告年度	年齢	性別	患側	分類 (smith)	主 訴	対側腎尿管	異所 開口	文献
1	永野ほか	1967	7歳	男	左	C	尿失禁	正 常	(-)	14
2	井沢ほか	1970	3歳	女	右	B	尿失禁	完全重複 腎盂尿管	臏前庭	15
3	波多野ほか	1971	4歳	女	右	B	尿失禁	不 明	臏前庭	16
4	清水ほか	1974	9歳	女	右	B	尿失禁	完全重複 腎盂尿管	臏前庭	17
5	郡・ほか	1978	3歳	男	両側	C・C	発熱 排尿痛	両側 三重尿管	(-)	4
6	胡口ほか	1980	4歳	女	右	B	尿失禁	不 明	臏前庭	6
7	新井ほか	1981	5歳	男	左	C	排尿異常	萎 縮 腎	(-)	7
8	著者・ほか	1984	5歳	女	両側	B・B	発熱 下腹部痛	両側 三重尿管	(-)	

2) 成 人 例

№	報告者	報告年度	年齢	性別	患側	分類 (smith)	主 訴	対側腎尿管	異所 開口	文献
1	後藤ほか	1955	24歳	女	左	B	血尿、発熱	完全重複 腎盂尿管	(-)	18
2	波多野ほか	1956	25歳	男	右	A	右側腹部痛	不完全重複 腎盂尿管	(-)	19
3	倉持ほか	1958	51歳	男	左	C	左下腹部痛	正 常	(-)	20
4	坂本ほか	1961	25歳	女	右	C	左側腹部痛	腎盂腎炎	(-)	21
5	中神ほか	1964	22歳	女	左	C	腰 痛	正 常	(-)	22
6	藤井ほか	1967	42歳	男	右	C	血 尿	不完全重複 腎盂尿管	(-)	23
7	林・ほか	1975	67歳	女	左	B	左下腹部痛	不完全重複 腎盂尿管	(-)	24

Table 2. 過剰尿管（6本以上）症例

№	報告者	報告年度	性別	年齢	尿管数	文献
1	Demoullin et al.	1955	男	35歳	右3 左3	25
2	Bauchard	1959	不明	63歳	右3 左3	26
3	Götzen	1962	女	14歳	右4 左3	27
4	Soderdahl et al.	1976	男	21歳	右4 左4	28
5	郡・ほか	1978	男	3歳	右3 左3	4
6	著者・ほか	1984	女	5歳	右3 左3	

インジゴカルミン排泄試験：インジゴカルミン静注にて尿道や膈からの青染尿の漏出は認められなかった。

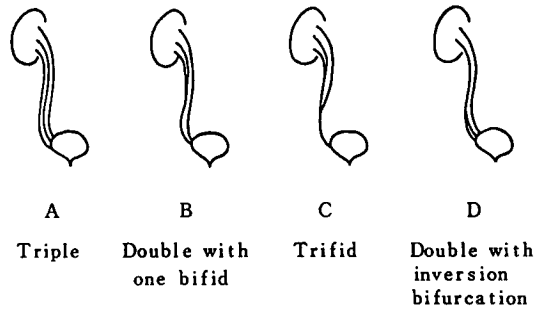
以上より、自験例は両側とも Smith の分類¹⁾ の B 型、Götzen の分類²⁾ の B 型であるきわめてまれな両側三重尿管症例であることが確認された。

考 察

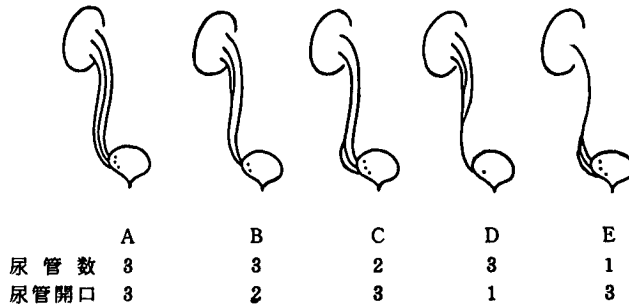
重複尿管は日常比較的頻繁に経験することの出来る尿路奇形であるが、三重尿管は非常にまれな奇形とされている。三重尿管の最初の報告は1870年の Wran³⁾ で、1978年の郡ら⁴⁾ の75例の報告以後われわれの調べたかぎりでは9例の報告⁵⁻¹³⁾ があり、現在までに世界では84例の報告をみるだけである。本邦では1955年の後藤ら¹⁸⁾ の報告が最初で、現在までに14例の報告をみることができる。このうち小児例は7例が報告されている。自験例は本邦では小児例としては8例目、成人例を含めて15例目の報告例と思われる (Table 1)。両側三重尿管はさらにまれで、現在までに3例^{4,25,26)} しか報告がなく、本邦では郡ら⁴⁾ の報告のみで、自験

例は世界では4例目、本邦では2例目の報告例と思われる。そのほかの過剰尿管としては Götzen²⁷⁾ は右四重左三重尿管を、Soderdahl²⁸⁾ らは両側四重尿管を報告している (Table 2)。

三重尿管は腎盂・尿管の数および尿管開口の数によりさまざまな型がみられる。1946年 Smith¹⁾ はこれらを整理して、A. 完全三重尿管、B. 分岐を有する二重尿管、C. 三分尿管、D. 逆分岐を有する二重尿管の4型に分類した (Fig. 3a)。このうちA型、C型が多く、B型がこれらにつぐとされている。その後、Götzen²⁾ は Smith の分類¹⁾ に、1本の尿管が3本に分岐し膀胱に3個の尿管開口を示す型を加えて5型による分類をおこない、腎盂・尿管および尿管開口の数により理解しやすい分類を試みた (Fig. 3b)。なお、この追加されたE型は現在までに1例も報告されていない。自験例は IVP, DIP, CT スキャン所見およびインジゴカルミン排泄試験などで尿管の異所開口が認められなかったこと、また、膀胱鏡所見で両側におのおの2個の尿管口が認められたことより、両側とも Smith の分類¹⁾ の B 型、Götzen の分類²⁾ の B 型で

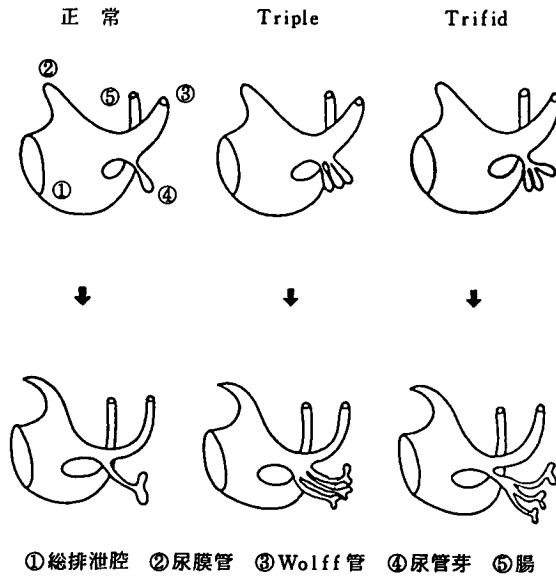


(a) Smith の分類 (1946)¹⁾



(b) Götzen の分類 (1957)²⁾

Fig. 3. 三重尿管の分類



(Lau & Henline より引用)²⁹⁾

Fig. 4. 三重尿管の発生



Fig. 5. 三重尿管 (Smith の分類¹⁾: B型)

あると思われる。

三重尿管の発生は胎児4週頃に Wolff 氏管近傍に発生する尿管芽の数および発達に異常に原因すると考えられている²⁹⁾。すなわち尿管芽が3個発生し、これらがそれぞれ独立して発達し膀胱およびほかの部位に開口すれば完全三重尿管となり、これに対して、1個の尿管芽が発達途上で3分した場合に3分尿管となると考えられている (Fig. 4)。また、自験例にみられる如き Smith の分類¹⁾のB型は最初に2個発生した尿管芽のうち1個が途中で2分したものと思われる。

完全重複腎盂尿管では Weigert-Meyer の法則より上腎盂尿管は下腎盂尿管の尾側に開口するが、完全三重尿管の場合もほとんどの症例がこの法則に従っているようである。しかし、この法則に反する症例もあり、Livaditis ら³⁰⁾は中腎盂尿管が対側外陰部に開口する症例を報告している。Smith の分類¹⁾のB型もほとんどの症例がこの Weigert-Meyer の法則に準じている。つまり上腎盂尿管は尾側に、中腎盂尿管と下腎盂尿管が結合して頭側に開口している (Fig. 5)。

本症における尿管の異所開口は自験例を含めた報告症例85例中18例 (21.2%) と高率に認められている。本邦でも報告症例15例中4例 (26.7%) に尿管の異所開口が認められ、欧米での報告と類似した成績である。これを成人例と小児例とで区別してみると、尿管の異所開口を認めた4例はすべて小児例で、自験例を含めた小児の報告症例8例のうち50.0%ときわめて高率に尿管の異所開口が認められている (Table 1)。これは尿管の異所開口により尿失禁というきわめて発見されやすい症状を示し、そのために小児期に発見、診断された結果と思われる。尿管の異所開口部位は男子では後部尿道、精囊、女子では尿道、膻前庭などの Wolff 氏管末端部に由来する組織に多く、また、異所性に開口する尿管は上腎盂尿管からのものがほとんどである。尿管開口部の発生については、Wolff 氏管

に生じた尿管芽が、Wolff 尿管が内側下方、後部尿道に向って開口部を移動するにしたがって分離して膀胱三角部に開口すると考えられている。三重尿管の場合にはこの発生機序にしたがえば、上腎盂にいたる尿管芽は下腎盂にいたる尿管芽に比して Wolff 尿管のより上方より発生するので、尿管芽が Wolff 尿管を離れて総排泄腔へ開口する時期が下腎盂にいたる尿管芽に比して遅れ、より内側下方へ開口することとなり、その結果として上腎盂尿管の後部尿道や陰前庭などへの異所開口の頻度が増加するものと思われる。

三重尿管の2次の合併症としては、自験例にも認められた尿路感染がもっとも多く、ついで水腎症または尿管症、結石が多く報告されている。自験例では現在のところ尿路感染以外にはあきらかな合併症は認められていないが、今後も尿路感染の再発およびそのほかの合併症の有無についても十分な経過観察が必要と思われる。

結 語

尿路感染にともなう発熱と下腹部痛を主訴とした5歳女児で、両側に三重尿管を有する非常にまれな症例を経験したので報告した。自験例は三重尿管としては世界では85例目、本邦では15例目の報告例と思われる。また、両側三重尿管としては世界では4例目、本邦では2例目の報告例と思われる。さらに三重尿管について若干の文献的考察も加えた。

本論文の要旨は第320回日本泌尿器科学会北陸地方会において発表した。

文 献

- 1) Smith I: Triplicate ureter. *Brit J Surg* **34**: 182~185, 1946
- 2) Götzen FJ: Beitrag zur Harnleitermultiplizität. *Zschr Urol* **50**: 523~527, 1957
- 3) Wraný A: Oester JB *Paediatrik* **1**: 108, 1870 (Smith I¹⁾の文献より)
- 4) Kohri K, Nagai N, Kaneko S, Iguchi M, Minami K, Kadowaki T, Akiyama T, Yachiku S and Kurita T: Bilateral trifid ureters associated with fused kidney, ureterovesical stenosis, left cryptorchidism and angioma of the bladder. *J Urol* **120**: 249~250, 1978
- 5) Fairchild WV, Solomon HD, Spence CR and Gangai MP: Unusual ureteral triplication. *Urol* **14**: 95, 1975
- 6) 胡口正秀・片寄功一・高橋美郎・伊達智徳: 尿管異所開口を伴った三重尿管の1例. *日泌尿会誌* **71**: 1121, 1980
- 7) 新井健男・高橋 剛: 骨盤腎、後部尿道弁および低位鎖肛を伴った三重重複尿管の1例. *小児外科* **13**: 1681~1686, 1981
- 8) Delaere K and Debruyne F: Triplication and contralateral duplication of ureter. *Urol* **19**: 302~303, 1982
- 9) Patel NP and Lavengood RW: Triplicate duplicate ureters. *Brit J Urol* **54**: 436, 1982
- 10) Merlini E: Trifid obstructed megaureter. *Urol* **22**: 62~63, 1983
- 11) Pode D, Shapiro A and Lebensart P: Unilateral triplication of the collecting system in a horseshoe kidney. *J Urol* **130**: 533~534, 1983
- 12) Lago CM, Casellas JG, Gonzalez FC, Graziano OM, Diaz FS, Ruiz PL and Perez GAL: Ureteral triplication and duplicated opposite kidney with refluxing ureterocele. *J Pediatr Surg* **18**: 614~616, 1983
- 13) Finkel LI, Watts FB Jr and Corbett DP: Ureteral triplication with a ureterocele. *Pediatr Radiology* **13**: 346~348, 1983
- 14) 永野俊介・生駒文彦・水谷修太郎: 盲管三分尿管の1例. *泌尿紀要* **13**: 229~236, 1967
- 15) 井沢 明・名出頼男・川上 隆・河村信夫: 反対側に重複尿管を伴い、両側に異所性開口を有する3重尿管の1例. *日泌尿会誌* **61**: 296~303, 1970
- 16) 波多野紘一・劉 自覚: 尿管異所開口の2例. *日泌尿会誌* **62**: 270, 1971
- 17) 清水 憲・片山泰弘・松村陽右・新島端夫: 両側尿管異所開口を有する右三重、左重複尿管の1例. *西日泌尿* **36**: 320~327, 1974
- 18) 後藤甲子男・荒木 啓: 三重複腎盂、尿管の一例. *東京医大雑誌* **13**: 493~496, 1955
- 19) 波多野裕敏・竹内昭良: 三重複腎・尿管の一例. *保安衛生* **3**: 795~796, 1956
- 20) 倉持正雄・小坂橋定夫・村上嘉幸: 結石及び三重複尿管を伴える左骨盤腎の1例. *臨床泌尿* **12**: 711~713, 1958
- 21) 坂本公孝・平田 弘: 三重尿管について. *皮と泌尿* **23**: 346~351, 1961

- 22) 中神義三・堀尾 豊：三重重複尿管. 臨皮泌 **18**: 997, 1964
- 23) 藤井 浩・雀部 将・大熊晴男・荒木 徹・他側の重複尿管を合併した三重重複尿管. 皮と泌 **29**: 613~614, 1967
- 24) 林 茂夫・湯村正仁・金田象顕・神原紘司・神原武志・折田薫三：腹部腫瘤を主訴とした三重重複腎盂尿管の1例. 広島医学 **28**: 1203~1205, 1975
- 25) Demoullin M and Nickels L Überzählige Nieren und Dystopien. Zschr Urol **48**: 183~185, 1955
- 26) Bauchard MJ · Un cas de trifidité urétérale bilaterale avec volumineuse hydronéphrose. J Urol **65**: 476~478, 1959
- 27) Götzen FJ: Doppelseitige Harnleitermultiplizität Ureter quadriplex et triplex. Zschr Urol **55**: 603~604, 1962
- 28) Soderdahl DW, Shiraki IW and Schamber DT Bilateral ureteral quadruplication. J Urol **116**: 255~256, 1976
- 29) Lau FT and Henline RB: Report of a case manifesting three ureters on one side with one ending blindly in an aplastic kidney and a bifid pelvis with a single ureter on the other side. JAMA **96**: 587~591, 1931
- 30) Livaditis A, Maurseth K and Skog PO : Unilateral triplication of the ureter and renal pelvis : Report of a case. Acta Chir Scand **127**: 181~184, 1964

(1984年7月30日受付)