

サルモネラ感染による膿腎症を合併した 尿管弁膜状構造物の1例

三重大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 川村壽一教授)

小倉 友二, 亀田 晃司, 林 宣男
有馬 公伸, 柳川 眞, 川村 壽一

A CASE OF VALVE-LIKE STRUCTURE IN URETER ASSOCIATED WITH PYONEPHROSIS DUE TO *SALMONELLA* INFECTION

Yuji OGURA, Koji KAMEDA, Norio HAYASHI,
Kiminobu ARIMA, Makoto YAMAGAWA and Juichi KAWAMURA
From the Department of Urology, Mie University School of Medicine

A 7-year-old boy had a fever of 39°C. Abdominal computed tomography (CT) revealed marked left hydronephrosis with hydroureter. Percutaneous nephrostomy was performed. *Salmonella infantis* was detected from the drainage urine. Cystourethrography after nephrostomy showed bilateral vesicoureteral reflex (VUR). On the left side, ureteropelvic junction (UPJ) stenosis was found. Left fistelography showed hydronephrosis, but the ureter was not visualized. A mechanism like a valve at the left UPJ was suggested; the bladder urine was able to ascend to the pelvis but not to be drained from the pelvis. The left renal function was not expected to recover from the findings of renal scintigram and CT. Left nephroureterectomy and right anti-VUR operation were performed. The extirpated renal and ureteral specimens revealed a nonpapillary tumorous structure like a valve at the left UPJ. The histological examination of the valve-like structure revealed the presence of two muscle layers without an adventitia folded at the UPJ.

(Acta Urol. Jpn. 45 : 261-264, 1999)

Key words: Valve-like structure, Salmonella, Pyonephrosis

緒 言

上部尿路の閉塞をきたすものの一つとして、尿管弁膜形成があるが稀である。今回、われわれは、VURおよび腎盂尿管移行部に尿管弁膜状構造物を有し、サルモネラの逆行性感染によると思われる膿腎症の1例を経験した。本症例は、尿管から腎盂への逆流を認めるが、腎盂から尿管への流出を認めないという特異な尿流状態をきたしたが、腎盂尿管移行部の尿管弁膜状構造物が一因となっていたと考えられたので、若干の文献的考察を加えてこれを報告する。

症 例

患者: 7歳, 男児
主訴: 発熱, 背部痛, 腹痛
既往歴 家族歴: 特記事項なし
現病歴: 1997年, 春の健診にて顕微鏡的血尿が認められ近医受診するも経過観察となった。同年7月, 39度台の発熱, 背部痛, 腹痛が出現し, 近医入院となった。抗生剤投与にて症状軽快し一時退院となったが, 8月中旬および9月に再度発熱し, 再入院となった。

腹部CTにて左水腎症を認めた。腎実質は菲薄化していた。拡張した腎盂, 腎杯はやや high density であり, ニボーを認め膿腎症が疑われた。ドレナージのため当科転院となり, 経皮的腎瘻造設術が施行された。

入院時現症: 身長 114 cm, 体重 21.2 kg. 体温 36.3°C, 血圧 110/60 mmHg, 脈拍 120回/分, 整。背部および腹部の圧痛が認められた。

入院時一般検査所見: 血算は白血球 15,300, 血液生化学検査では CRP 15.0 と上昇, BUN 13.6, Creatinine 0.5 であった。尿検査は蛋白 (-), 糖 (-), pH 8.0で, 沈渣にて赤血球 5~10/hpf, 白血球 20~30/hpf, 細菌 (-) であった。腎瘻造設時のカテーテル尿の培養で *Salmonella infantis* が検出された。便からは *Salmonella* は検出されなかった。カテーテル尿の沈渣は赤血球 10~15/hpf, 白血球 120~150/hpf であった。

X線検査所見: 腹部CTで左水腎症を認めた。腎実質は菲薄しており, 拡張した腎盂, 腎杯はやや high density であり, ニボーが認められた。右腎は代償性と思われる肥大を認めた。左尿管は膀胱に入る部

位まで拡張していた (Fig. 1). また, 膀胱尿道造影 (CUG) では左側膀胱尿管逆流症 (VUR) を認めた.

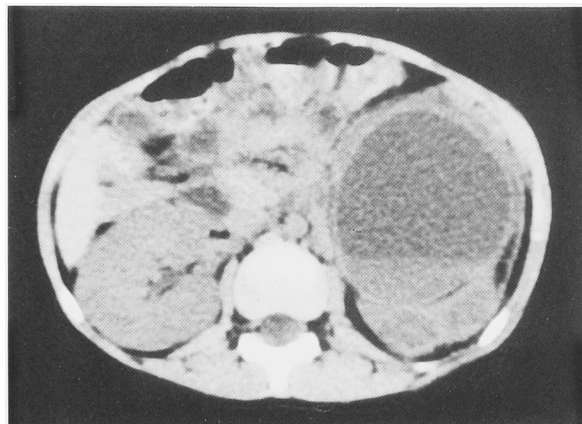


Fig. 1. Abdominal CT showed marked hydronephrosis on the left kidney and compensatory hypertrophy of the right kidney.

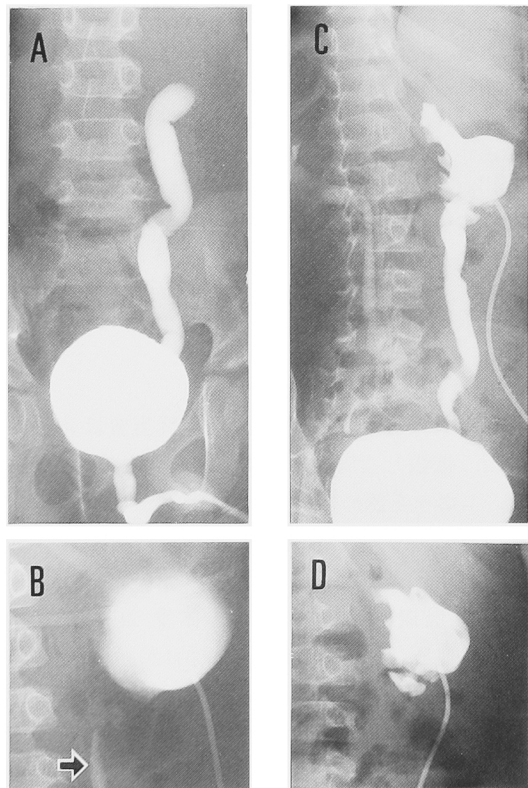


Fig. 2. A: Cystourethrography (CUG) before nephrostomy formation showed left VUR and hydronephrosis, but renal pelvis was not visualized. B: Left fistulogram showed left UPJ stenosis and the contrast medium did not move to the ureter. A part of the ureter was visualized, but it was a residual ureteral image of the VUR at CUG (arrow). C: CUG one month after nephrostomy showed bilateral VUR. The passage through the left pelves was found. D: Left fistulography. The left ureter was not visualized.

拡張した尿管を認めたが腎盂は造影されず, UPJ まで造影されるのみであった (Fig. 2-A). 腎瘻造設時の左腎瘻造影は拡張した腎盂, 腎杯を認めたが, 尿管は造影されず, 尿管への流通は認められなかった (Fig. 2-B).

以上の所見から, 左側 VUR および左腎盂尿管移行部狭窄症に合併した膿腎症と診断した. 背部痛, 腹痛は腎瘻造設の翌日より消失した. 尿培養で認められた *Salmonella* は fosfomycin, norfloxacin の投与にて消失した. 血液検査においても白血球は減少し, CRP も陰性化した. 腎瘻からの尿の流出は腎瘻造設翌日より認められ, 次第に増加し10日後には自尿とほぼ同量となったが, 腎静態シンチグラムでは左腎に集積を認めなかった. そこで, CUG を再度施行したところ, 今回は右側に2度 VUR を認めた. また, 左側に関しては前回では造影されなかった左腎盂腎杯まで逆流を認め, UPJ においてせり立ったように狭窄を認めた (Fig. 2-C). しかし, 左腎瘻造影では前回と同様, 尿管は造影されなかった (Fig. 2-D) その後の CT では左腎の萎縮を認めた. これらの所見から腎瘻尿の増加は, 膀胱尿が VUR により見かけ上増加しているものと考えた. 左腎の機能回復は不可能であり, 感染の原因となりうるかと判断し, 10月28日, 左腎尿管摘除術および右 anti-VUR を施行した.

手術所見: 傍腹直筋切開にて後腹膜腔に達し, 腎を観察すると, 左腎は高度に萎縮していた. 摘出後, 尿管に切開をいれると UPJ において 7×9 mm の非乳頭状の隆起物を認めた (Fig. 3).

標本の組織学的所見: UPJ の非乳頭状隆起部の粘膜上皮に軽度増生, 線維化, 単球浸潤を認めた. 隆起は平滑筋層を含んでいた. 隆起内に尿管の平滑筋が折れ込んでいるような所見であり, 隆起部において二層の筋層を形成していた. また, 外膜の折れ込みは認められなかった. 悪性所見は認められなかった (Fig.

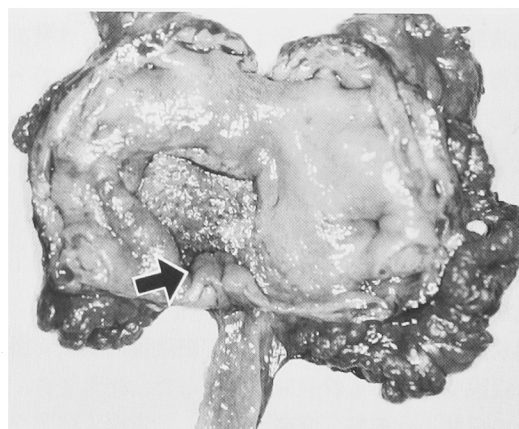


Fig. 3. Surgical specimen. Cut surface indicated nonpapillary tumor (7-9 mm) at the UPJ (with an arrow).

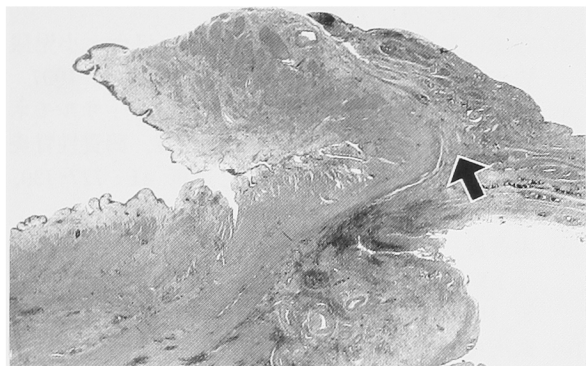


Fig. 4. Microscopic findings at the UPJ. Two smooth muscle layers without an adventitia fold at the UPJ forming a valve-like mass structure (with an arrow) (H.E. stain).

4).

術後経過: 術後経過は良好であり, エコーにて右腎に水腎症認めず, CUGにてVURの消失を確認後, 退院した。

考 察

先天的尿管弁膜形成は稀な疾患である。尿管弁の診断基準として Wall と Wachter が示した3条件, すなわち 1) 弁膜は尿管粘膜の横行の壁であり, 組織学的に平滑筋層を含む, 2) 弁より上部の尿路に閉塞性病変を認めない, 3) 弁膜以外の尿路の閉塞性病変を認めない, がある¹⁾ また, 後天的に発生したと考えられるものは区別される必要がある³⁾ 尿管弁の発生原因は明らかでなく, 様々な仮説が唱えられている。Chwalle によると, 胎生期には尿管芽の開口部に Chwalle 氏膜が存在するが, 後腎からの尿分泌が始まるとその圧力によって虚血性変化が引き起こされる。これにより Chwalle 氏膜が破壊され尿管は開通する。この Chwalle 氏膜が消失せず残存し尿管弁を形成するとしている²⁻⁴⁾ また, Mering によると, 胎生1カ月の尿管は細い紐状で, 内膜に多数の皺壁 (fold) が存在している。本来発育に伴い尿管の長さが増すことによって fold は消失するが, その一部が消失せずに残り尿管弁が形成されるとしている^{2,4)} Maizels らは, 胎生期における尿管の発育が体幹の発育を上回ると, 尿管は蛇行あるいは続発性の壁を形成し, これが弁膜形成につながると述べている²⁻⁶⁾ 本症例では, 尿管の平滑筋が隆起内に折れ込んでいるような所見であった。外膜の折れ込みは認められなかった。VUR を合併しており, これによる二次的変化の可能性が考えられる。しかし, 組織学的所見にて外膜の折れ込みは認められないことより, 単なる二次的変化の折れ込みとも考えにくく, 尿管弁膜状構造物という表現にした。

本症例は両側の VUR を合併していた。左側に関しては尿管から腎盂への逆流を認めるものの, 腎盂から尿管への流出は認められず上行性尿路感染が生じやすい状態になったと考えられる。特異な尿流状態になった原因は, UPJ の尿管弁膜状構造物が弁状に働いたこと, 腎門部が腹側に向くような malrotation を生じていたこと, などが考えられる。

腎瘻造設時の CUG では左 VUR を認めたが, UPJ より上部は造影されなかった。その後の CUG で腎盂まで造影されたのは, 膿腎による炎症反応, 浮腫が軽快したこと, 巨大な水腎症が改善されたことによると考えられた。

サルモネラ感染症は一般臨床で比較的良好に経験されるが, ほとんどが消化器症状である。稀には乳幼児を中心として菌血症や髄膜炎などをきたすことが知られている⁸⁻¹⁰⁾ サルモネラ感染症に合併する腎障害の報告は少なく, 急性腎不全, 間質性腎炎, 糸球体性腎炎などが報告されている。その発症機序としては, 1) サルモネラ腸炎による下痢などに伴う脱水, 2) エンドトキシンによる尿細管障害, 3) 敗血症ショック, 4) 横紋筋融解によるミオグロビン尿症などが考えられている^{8,9)} また, 調べ得たかぎり, サルモネラの上行性尿路感染による腎盂腎炎の報告はみあたらなかった。本症例では便培養からサルモネラが検出されなかったが, 尿培養からサルモネラが検出されたこと, 患者に VUR および UPJ-stenosis が認められたこと, 腎瘻造設により症状が改善したこと, などを考えるとサルモネラによる上行性尿路感染であったと推測される。摘出した腎は高度に萎縮しており, 長期間にわたる変化と考えられ, サルモネラ感染が腎機能廃絶におよぼした影響は少なかったと思われる。なお, 患者は, ミドリガメを飼っていたことがあり, 感染源となった可能性があるが, 推測の域を超えない¹⁰⁾

本症例は腎シンチグラム, CT より腎機能の改善が期待できず, 今後感染の原因になりうると判断したため, 左腎摘出を施行した。

結 語

7歳, 男児の上行性サルモネラ感染によると思われる膿腎症を合併した腎盂尿管移行部の尿管弁膜状構造物の1例を経験したので報告した。尿管弁膜状構造物が一因となり尿管から腎盂への逆流を認めるものの, 腎盂から尿管への流出は認められないといった特異な尿流状態をきたしていた。

文 献

- 1) Wall B and Wachter HE: Congenital ureteral valve: Its role as primary obstructive lesion: classification of literature and report of an authentic

- cases. J Urol **68**: 684-690, 1952
- 2) 宮川絢子, 馬場司郎, 田崎 寛: 先天性尿管弁膜形成の2例. 泌尿紀要 **40**: 65-69, 1994
 - 3) 宮城徹三郎, 中嶋孝夫, 島村正喜: 腎盂に弁膜様構造物を認めた腎盂尿管移行部狭窄症の1例. 泌尿紀要 **42**: 677-678, 1996
 - 4) Chwalle R: The process of formation of cystic dilatation of the vesical end of the ureter and diverticula at the ureteral ostium. Urol Cutan Rev **31**: 499-504, 1980
 - 5) Mering JH, John FS and Ruben FG: Congenital ureteral valves. J Urol **107**: 737-739, 1972
 - 6) Maizels M and Stephens FD: Valves of the ureter as a cause of primary obstruction of the ureter; anatomic, embryologic and clinical aspects. J Urol **123**: 742-747, 1980
 - 7) 斎藤一隆, 湯村 寧, 千葉喜美男, ほか: 小児尿管ポリープの1例. 泌尿紀要 **43**: 45-47, 1997
 - 8) 吉川賢二, 余田 篤, 小國龍也, ほか: サルモネラ腸炎を契機に, ネフローゼ症候群, 間質性腎炎を同時発症した男性例. 腎と透析 **41**: 727-730, 1996
 - 9) 木曾典一, 米田昌道, 岡本 満, ほか: サルモネラ下痢症により急性腎不全を呈した2例. 腎と透析 **15**: 161-165, 1983
 - 10) 武内可尚: サルモネラ (カメ) 症. 小児科 **38**: 1235-1240, 1997
- (Received on August 19, 1998)
(Accepted on January 20, 1999)