

尿管異所開口を伴った中部尿管狭窄の1例

大阪医科大学泌尿器科学教室(主任:岩動孝一郎教授)

平井 景, 上田 陽彦, 瀬川 直樹, 山本 員久
金原 裕則, 鈴木 俊明, 高崎 登CONGENITAL MIDURETERAL STRICTURE WITH
ECTOPIC URETER: A CASE REPORTKei Hirai, Haruhiko Ueda, Naoki Segawa,
Kazuhisa Yamamoto, Hironori Kanehara, Toshiaki Suzuki
and Noboru Takasaki*From the Department of Urology, Osaka Medical College*

A 7-year-old girl was hospitalized with urinary incontinence. Intravenous pyelography showed the dilatation of upper segment of the right kidney, in which slight radioisotopic accumulation was detected on renal scintigraphy with ^{99m}Tc -DMSA. On computerized tomographic (CT) scan, a cystic mass shadow occupied the retroperitoneal space. During surgery, the right kidney was found to be completely duplicated and the ectopic ureter opened in Vestibule vaginae accompanied with midureteral stricture. The ectopic ureter was incised above the strictural site and anastomosed with the ureter of the lower segment. Although approximately 700 cases of ectopic ureter have been reported in Japan, congenital midureteral stricture accompanying ectopic ureter is extremely rare.

(Acta Urol. Jpn. 40: 71-74, 1994)

Key words: Congenital midureteral stricture, Ectopic ureter

緒 言

先天性尿管狭窄の頻度は、小児剖検例の0.6%と報告されており¹⁾、そのほとんどは腎盂尿管移行部と尿管膀胱移行部の狭窄であり、中部尿管狭窄の報告は少ない。尿管狭窄の成因は一般に胎生期の尿管発生障害と考えられており、Allen²⁾の胎生期の異常血管による外因性圧迫説や、Ruano-Gilら³⁾の胎生期の尿管再開通障害説などが知られているが、いまだ統一された見解はえられていない。一方、尿管異所開口は尿路奇形の中では比較的頻度が高く、本邦においても約700例が報告されている。しかし、先天性中部尿管狭窄に尿管異所開口を伴った症例は非常に稀である。今回われわれは、尿管異所開口を伴った中部尿管狭窄の1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 7歳, 女児
主訴: 尿失禁

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 7歳時に急性熱性粘膜皮膚リンパ節症候群(川崎病)に罹患したが、入院加療にて軽快した。

現病歴: オムツのとれる生後2~3年がすぎても、下着が絶えずぬれていることに母親が気づいていたが、少量であるため放置していた。1991年6月に川崎病のため本院小児科に入院した。入院後も、尿失禁が持続していたため、同年7月に当科を紹介された。諸検査の結果、右側重複腎盂尿管および尿管異所開口が疑われたため、1992年8月手術目的で当科に入院した。

入院時現症: 身長128cm, 体重29.5kgと発育は正常。胸腹部理学的所見には異常は認められなかった。外陰部所見として、膈中隔が認められた。明らかな尿管の開口部は認められなかった。

入院時検査成績: 一般血液検査, 血液生化学検査では異常は認められなかった。尿所見もとくに異常は認められなかった。

画像診断所見: IVPでは、右腎は正常の腎盂腎杯

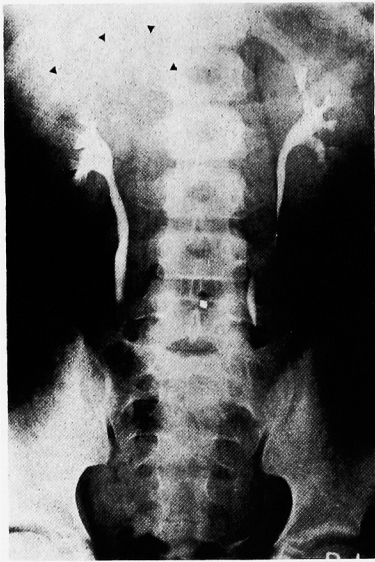


Fig. 1. IVP showed the dilatation at the upper region of the right kidney (arrow).



Fig. 2. Abdominal CT scan showed a cystic mass shadow at the upper region of the right kidney.

像とは別に、腎上極に造影剤の排泄がわずかに認められた (Fig. 1)。腹部 CT 検査では、右腎上極より仙腸関節の高さに達する嚢腫状腫瘤が認められ、その内容は均一で low density を呈していた (Fig. 2)。腹部超音波検査では、CT で認められた腫瘤が cystic pattern を呈し、その内容が水様性であることが判明した。^{99m}Tc-DMSA による腎シンチグラムでは、右腎上極に RI の集積がわずかに認められた。排尿時膀胱撮影では、VUR は認められなかった。腔造影検査では、異常所見は認められなかった。

膀胱尿道鏡所見・膀胱三角部は正常であり両側の尿管口はともに1個で正常部位に存在した。膀胱および尿道の粘膜に異常な隆起は認められなかった。

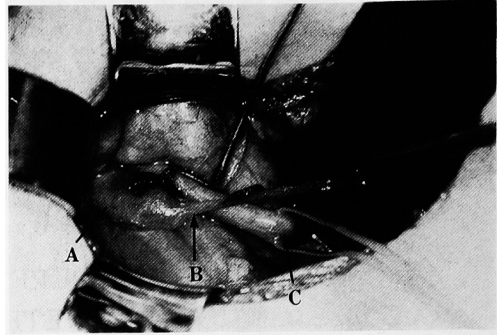


Fig. 3. Intraoperative finding A: ectopic ureter B: ureteral stricture C: ureter of lower segment.

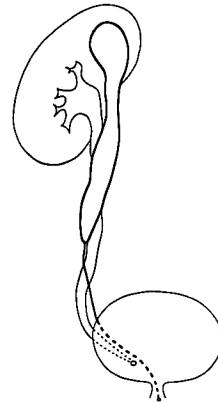


Fig. 4. Schematic illustration of the right upper urinary tract.

以上より、右側重複腎盂尿管、尿管異所開口を疑い、1992年9月3日に手術を施行した。

手術所見：右下腹部傍腹直筋切開にて後腹膜腔に到達した。膀胱右側を剝離すると、正常の外観を有する尿管とそれに接して細い索状物が認められた。この索状物を剝離すると、総腸骨動脈との交叉部より中樞側は拡張し、上半腎につながっていた。狭窄部に外因性の圧迫は認められなかった (Fig. 3)。術中造影検査にて上半腎尿管は、腸骨動脈との交叉部より中樞側が拡張しており、遠位側の尿管は狭小化し口径は約 1 mm であった。上半腎尿管の開口部を確認する目的で、狭小化した尿管に24ゲージのエラスター針を挿入し生理食塩水を注入したところ外尿道口部6時近傍の腔前庭部より生理食塩水が噴出した (Fig. 4)。狭窄部より遠位の尿管には正常な蠕動が認められず、内腔が狭小化していたため狭窄部より約 5 cm 腎側で上半腎尿管を切断し、下半腎尿管との間で端側吻合をおこなった。

術後経過は良好で, 手術直後から尿失禁は消失した。術後4カ月目のIVPでは, 上半腎の腎盂腎杯も造影された。

病理組織所見: 狭窄部および遠位側の尿管は筋層が著しく萎縮しており, 一部に線維化が認められた。

考 察

尿管異所開口は発生学的には, 中腎管末端部における尿管芽の位置異常によって生じると考えられている⁴⁾。Campbellによる剖検例の0.05%にみられ, その80%が重複腎盂尿管に合併している。尿管の異所開口部は女性では尿道と陰前庭部が多く, 男性では精囊と後部尿道が多い。おもな臨床症状は, 女性では尿失禁と尿路感染であり, 男性では発熱, 腹痛と排尿障害である。治療は, 所属腎機能が十分に保存されている場合には, 一般に尿管膀胱新吻合術がおこなわれている。所属腎機能を評価する際には, 腎シンチグラムが最も有用であるといわれている⁴⁾。自験例では腎シンチグラムにて上半腎へのRIの集積がわずかながら認められたため, 上半腎を温存した。

一方, 先天性尿管狭窄の頻度は一般に小児剖検例の0.6%といわれており¹⁾, そのほとんどが腎盂尿管移行部および尿管膀胱移行部の狭窄であり, 中部尿管狭窄の頻度は尿管狭窄の0~15%と報告されている^{2,5-7)}。尿管狭窄の成因は一般に胎生期の尿管発生障害と考えられており, Ruano-Gil⁹⁾らは胎生早期の尿管が上皮により充塞された後に, recanalizationが障害され狭窄を生じるとしている。一方, Allen²⁾は, 尿管狭窄には異常血管を合併する頻度が高いことと, 尿管狭窄部の平滑筋束が減少していることから, 尿管が発生する途上で異常血管によって尿管が圧迫され, そのために筋層の発育が障害され, その結果として尿管狭窄が生じるのではないかと推測している。さらに彼は, 尿管の筋層発生の早期に尿管が圧迫された場合には, 高度の狭窄が生じ, 圧迫の原因となる異常血管は胎生期間中に消失する。しかし, 胎生後期に尿管が圧迫された場合には, 狭窄が比較的軽度であり, 生後も異常血管は残存する可能性があるとして述べている。

先天性尿管狭窄の中で異常血管が認められる頻度は尿管の部位により異なる。腎盂尿管移行部では腎動脈下極過剰枝が知られている^{2,8)}。中部尿管狭窄の場合は, 総腸骨動脈⁹⁾, 下大静脈⁹⁾, 下腹壁動脈の膈枝¹⁰⁾, 卵巣静脈¹¹⁾などが報告されている。尿管膀胱移行部に異常血管が認められるのは稀である。自験例では, 狭窄部位に外因性の圧迫はなく, 組織学的に筋層

の萎縮が認められたことよりAllenのいう胎生期の比較的早期に尿管の圧迫がおこったのではないかと推測される。また, 狭窄部より遠位側の尿管の筋層も萎縮し線維化が認められた。これは, 尿管に何らかの感染が加わったために筋層の線維化が招来され, この結果狭窄が助長されたのではないかと思われる。中部尿管狭窄に対する治療としては, 狭窄部を切除し, 尿管端々吻合をおこなうのが一般的であるが, 島田ら¹²⁾は, 透視下の順行性腎盂造影や術中のpressure flow studyにより, 狭窄部位より遠位の尿管機能が, 正常か否かを判断する必要があると述べている。自験例では, 狭窄部より遠位側の尿管には蠕動が認められず, 狭窄の距離が長いと, 尿管膀胱新吻合は行わずに拡張した部分の上半腎尿管を下半腎尿管に端側吻合した。

結 語

尿管異所開口を伴った中部尿管狭窄の1例を報告し, 尿管狭窄の発生原因について文献的考察を加えた。

なお本論文の要旨は第142回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Perlmutter AD, Retik AB and Bauer SB: Anomalias of the upper urinary tract. In: Campbell's Urology. Edited by Walsh PG, Gittes RF, Perlmutter AD, et al. 5th ed., pp. 1665-1759, WB Saunders Co Philadelphia, 1986
- 2) Allen TD: Congenital ureteral strictures. J Urol 104: 196-204, 1970
- 3) Ruano-Gil D, Coca-Payeras A and Tejedomateu A: Obstruction and normal recanalization of the ureter in the human embryo. Its relation to congenital ureteric obstruction. Eur Urol 1: 287-293, 1975
- 4) 安達高久, 江崎和芳, 山本啓介, ほか: 尿管膀胱新吻合術を行った尿管異所開口症の腎機能評価. 泌尿紀要 36: 451-455, 1990
- 5) Campbell MF: The dilated ureter in children: A brief consideration of its cause, diagnosis, and treatment. Am J Surg 39: 438-451, 1938
- 6) Cussen LJ: The morphology of congenital dilatation of the ureter: Intrinsic ureteral lesion. Aust NZJ Surg 41: 185-194, 1971
- 7) 村城孝次, 加藤哲夫, 蛇口達造, ほか: 中部尿管狭窄の1幼児例. 日本小児科 25: 65-70, 1989
- 8) Drake DP, Stevens PS and Eckstein HB:

- Hydronephrosis secondary to ureteropelvic obstruction in children. A review of 14 years of experience. *J Urol* **119**: 649-651, 1978
- 9) 田口恵造, 島田憲次, 森 義則, ほか: 馬蹄腎, 下大静脈後尿管および右腎盂尿管移行部狭窄を合併した1例. *泌尿紀要* **32**: 745-750, 1986
- 10) Javadpour N, Solomon T and Bush IM: Obstruction of the lower ureter by aberrant vessels in children. *J Urol* **108**: 340-342, 1972
- 11) King LR: Ureter and ureteropelvic junction. In: *Clinical Pediatric Urology*. Edited by Kelalis PP. 2nd ed., WB Saunders Co, Philadelphia, 1986
- 12) 島田憲次, 小池 宏, 細川尚三, ほか: 中部尿管狭窄に対する尿管端々吻合術の経験. *日本小児外科* **27**: 873-877, 1991

(Received on July 7, 1993)
(Accepted on August 31, 1993)