

完全重複尿管の異所開口による尿失禁に対して左上半腎への 経カテーテル動脈塞栓術 (TAE) が奏効した 1 例

隠岐 雄太, 阿部 豊文, 中澤 成晃, 福原慎一郎
植村 元秀, 木内 寛, 今村 亮一, 野々村祝夫
大阪大学大学院医学系研究科器官制御外科学講座 (泌尿器科学)

A CASE OF URINARY INCONTINENCE DUE TO ECTOPIC URETER WITH COMPLETE URTERAL DUPLICATION SUCCESSFULLY TREATED BY TRANSCATHETER ARTERIAL EMBOLIZATION (TAE)

Yuta OKI, Toyofumi ABE, Shigeaki NAKAZAWA, Shinichiro FUKUHARA,
Motohide UEMURA, Hiroshi KIUCHI, Ryoichi IMAMURA and Norio NONOMURA
The Department of Urology, Osaka University Graduate School of Medicine

A 22-year-old woman who was referred to our hospital presented with a complaint of urinary incontinence since childhood. Abdominal contrast-enhanced computed tomography revealed complete duplication of the left ureter. In addition, the upper half of the left kidney showed poor contrast, accompanied by signs of hydronephrosis. Magnetic resonance urography failed to show an opening between the upper half of the left kidney and the ectopic ureter. Cystoscopy revealed two normally positioned ureteral orifices. After intravenous injection of indigo carmine, however, the dye became evident in the vagina. Thus, she was diagnosed to have urinary incontinence due to complete duplication of the left ureter and an ectopic ureteral opening into the vagina. Transcatheter arterial embolization of the upper half of the kidney, the origin of the ectopic ureter, immediately relieved the patient of urinary incontinence. At the 6-month follow-up, the patient had experienced no recurrence or complications.

(Hinyokika Kyo 67 : 317-321, 2021 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_67_7_317)

Key words: Complete ureteral duplication, Transcatheter arterial embolization (TAE), Ectopic ureter, Urinary incontinence

緒 言 症 例

異所性尿管とは本来の尿管開口部以外に尿管が開口する先天性疾患である。男性では開口部位が精囊、膀胱頸部、後部尿道など尿道括約筋の近位側である頻度が高いため尿失禁を認めることは少なく、尿路感染症や精巣上体炎を認めることが多い¹⁾。一方、女性では開口部位が尿道や膣である頻度が高く、持続する尿失禁や反復性の尿路感染症を認めることが多い¹⁻³⁾。異所性尿管による尿失禁に対する治療法として、異所性尿管の所属腎機能が低下している場合には半腎切除術が選択されてきた⁴⁾。近年では開腹手術と比較し低侵襲な腹腔鏡下手術が選択されることが多い^{5,6)}。一方、腹腔鏡手術よりもさらに低侵襲かつ整容性に優れた経カテーテル動脈塞栓術 (transcatheter arterial embolization, TAE) が、低形成腎の異所性尿管による尿失禁に対して奏効した報告が散見されるようになった⁷⁻¹¹⁾。今回、われわれは完全重複尿管の異所開口による尿失禁に対して TAE が奏効した 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

患者：22歳，女性
主 訴：尿失禁
既往歴：生後 5 カ月で鎖肛手術 (直腸前庭瘻)
家族歴：特記すべき事項なし
現病歴：学童期より尿失禁を自覚。成人後も尿失禁が続き、近医泌尿器科を受診。CT および MRI 検査で左完全重複尿管，尿管異所開口が疑われ、精査加療目的に当科紹介となった。
現 症：身長 157 cm，体重 39 kg，血圧 103/65 mmHg，脈拍 52 回/分。
理学所見：肛門は腹側に新たに形成され，旧肛門は癒痕化。
末梢血液検査：WBC 4,800/ μ l，RBC 464万/ μ l，Hb 13.2 g/dl，Plt 16.6万/ μ l。
血液生化学検査：Na 139 mEq/l，K 4.5 mEq/l，Cl 106 mEq/l，Cr 0.65 mg/dl (eGFR 94.6 ml/min/1.73 m²)，T-Bil 0.6 mg/dl，AST 28 U/l，ALT 30 U/l，TP 7.2 g/dl，Alb 4.4 mg/dl，CRP 0.04 mg/dl。
尿検査：尿比重 1.007，PH 6.5，尿蛋白 (-)，赤

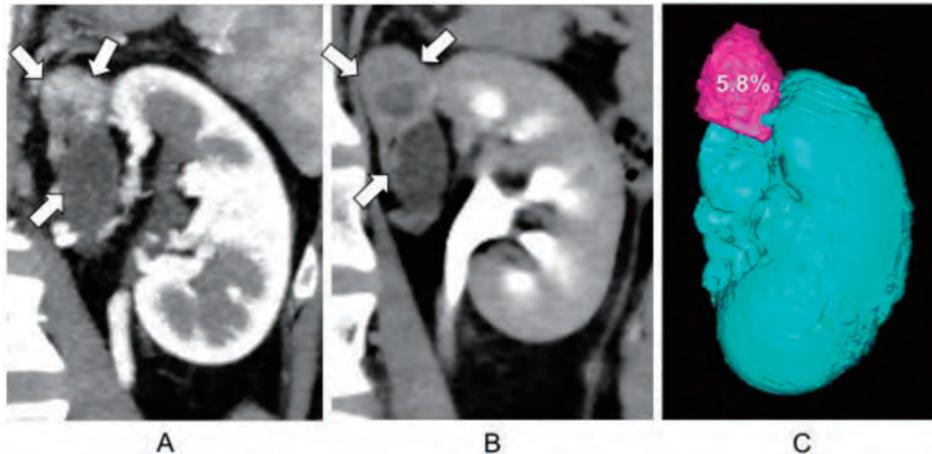


Fig. 1. a, b An abdominal contrast CT examination showing a duplication of the left renal pelvis and ureter. The upper half of the left kidney (∇ arrow head) had poor contrast and showed hydronephrosis. c Three-dimensional analysis images of Synapse Vincent showing the dominant area of the upper half of the left kidney where the ectopic ureter was located. The volume of the upper half of the left kidney was only 5.8% of the entire left kidney.

血球 0~1/hpf, 白血球 0~1/hpf.

尿失禁症状・QOL 評価質問票 (International Consultation on Incontinence-Questionnaire, ICIQ-SF) : Q1 頻度 1日数回 4/5点, Q2 失禁量 中等量 4/6点, Q3 QOL の低下 8/10点, 合計16/20点.

尿流動態検査 : 下部尿路機能の異常は認めず.

画像検査所見 : 腹部造影 CT で左重複腎盂尿管を認め, 上半腎は造影効果不良で水腎症を呈していた (Fig. 1A, B). MR-urography で下半腎所属尿管は膀胱に開口していたが, 左上半腎所属尿管の開口部は同定できなかった (Fig. 2).

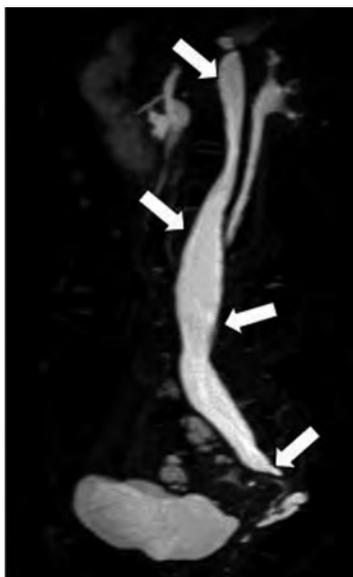


Fig. 2. MR-urography: the opening of the ectopic ureter from the upper half of the left kidney could not be confirmed. Lower renal urinary tract opened to the bladder.

膀胱鏡検査 : 膀胱内の正常位置に左右尿管口は1カ所ずつ確認され, 膀胱内に異所開口は認めなかった. インジゴカルミン静注後, 陰内ガーゼの青染が確認されたが, 開口部は確認できなかった.

以上より左完全重複尿管, 陰内へ開口した異所性尿管による尿失禁と診断した. 造影CTにて異所性尿管の所属する上半腎の腎機能は低下しており, CT volumetry でも左腎全体の5.8%とわずかであり (Fig. 1C), 上半腎に対する TAE を行う方針とした.

入院後経過 : 左上位尿管の所属する上半腎には3本の動脈分枝が流入しており (Fig. 3A), 同部に TAE を施行した. まずマイクロカテーテルを挿入し, エタノールを注入後, マイクロコイルで塞栓した. 塞栓後, 上半腎の造影効果は消失した (Fig. 3B). 術翌日より尿失禁の頻度, 失禁量ともに改善し, 術2日後に退院となった. TAE 後2カ月時点で尿失禁は完全に消失し, ICIQ-SF は0点になった. TAE 前の eGFR は $94.6 \text{ ml/min/1.73 m}^2$ であったが, TAE 後は $88.6 \text{ ml/min/1.73 m}^2$ とわずかな低下にとどまった. TAE 施行後6カ月間経過した現在, 尿失禁の再発や合併症を認めていない.

考 察

異所性尿管は尿管芽の発生異常を原因とする先天性異常であり, 尿管が本来の尿管開口部以外に開口した状態をいう. 胎生5~7週頃に中腎管 (Wolff 管) から発生する尿管芽の場所が正常より頭側になることで, その部位が膀胱三角部に取り込まれるのが遅れて異所性尿管となる¹⁾. 正常な位置からずれた尿管芽は後腎組織の辺縁と接するものの癒合できず, 低形成腎や異形成腎となる (bud theory)²⁾. 異所性尿管の頻度

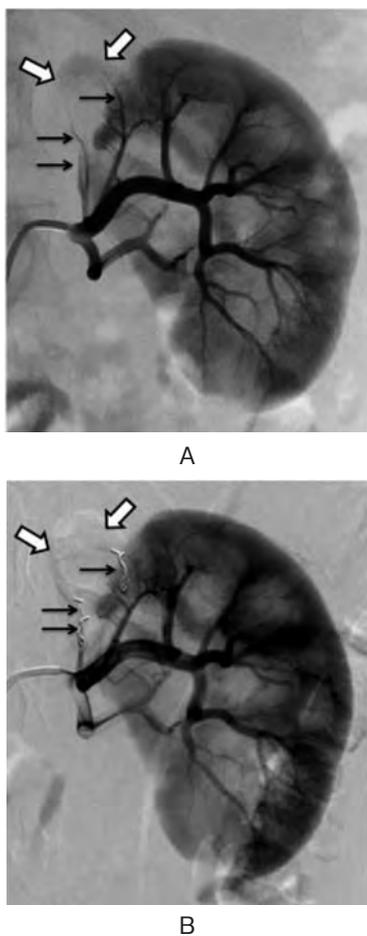


Fig. 3. Renal angiograms before (a) and after (b) embolization. a Three arterial branches (↓ arrow) were involved in the upper half kidney (▽ arrow head) to which the left upper ureter belonged. b After inserting a microcatheter and injecting ethanol into these arterial branches (↓ arrow), these arterial branches (↓ arrow) were embolized with a microcoil. After embolization, the contrast effect of the renal parenchyma (▽ arrow head) disappeared.

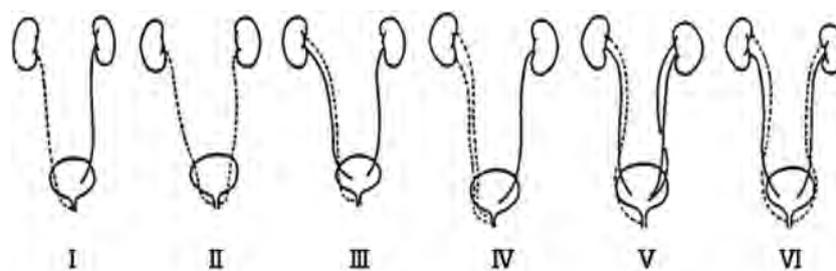
は500例に1例とされ, 男女比は日本で1:7, 欧米で1:3と女性に多い¹³⁾. 本邦における異所性尿管の開口部位は女性では膈58%, 膈前庭14%, 尿道12%と報告され, 男性は精囊55%, 尿道15%と報告されてい

る¹⁴⁾. 合併症については, 低形成腎42.9%, 腎無形成3.1%, 腎嚢胞1.6%, 骨盤腎1.3%, 腔中隔や双角子宮などの婦人科関連の合併奇形が5.5%と報告されている¹⁵⁾. 自験例では鎖肛手術の既往があるが, 寺田らの報告¹⁴⁾では異所性尿管に鎖肛を合併していた症例は648例中1例のみであった. 東田ら¹⁶⁾の鎖肛57症例の集計によると, 尿路奇形の合併頻度は, 高位鎖肛で85.7%, 中間位鎖肛で65.5%, 低位鎖肛で38.1%と高率であったが, その内訳は膀胱尿管逆流症が38.6%, 腎無形成, 異形成, 低形成などの腎形成異常が15.7%, 腎盂尿管移行部狭窄などの上部尿路通過障害が8.8%, 尿道狭窄が10.5%と報告されているが, 異所性尿管の合併した症例はなかった.

分類には Thom 分類¹⁷⁾が一般に用いられる (Fig. 4). 本邦女性では単一尿管の異所開口である I 型が65%と最多であり, 自験例のような一側重複尿管の上位尿管異所開口の III 型が22.6%と2番目に多い. 一方欧米では上腎由来の重複尿管異所開口 (III 型および V 型) が70~80%と多い¹⁵⁾.

異所性尿管による尿失禁の治療は外科手術が基本となる. 一般的には異所性尿管の所属腎機能に応じて術式が選択される. 異所性尿管の所属腎機能が残存している場合は尿管膀胱新吻合術が選択され, 異所性尿管の所属腎機能が低下している場合は腎摘除術または半腎摘除術が選択される. 近年は開腹手術と比較し低侵襲な腹腔鏡手術が選択されるようになってきた^{5,6)}. 2000年以降に本邦で異所性尿管による尿失禁に対して腹腔鏡下腎尿管摘出術または腹腔鏡下半腎尿管摘出術を施行した症例は16例で¹⁸⁻²⁶⁾, その術後在院日数は4~9日となっており, 合併症として無症候性気胸が1例に認められた.

一方, Groote らの報告⁷⁾を始め, 腹腔鏡手術よりもさらに低侵襲かつ整容性に優れた TAE が, 異所性尿管による尿失禁に対して奏効した報告が散見されるようになった. 異所性尿管による尿失禁に対して TAE を施行した報告は海外も含め6例報告されており, 自験例が7例目であった⁷⁻¹²⁾ (Table 1). 低形成腎を呈していた単一尿管膈開口の I 型に対する TAE が4例



Thom B: Zeitschr Urol. 22: 417-468, 1928

Fig. 4. Thom's classification.

Table 1. Reported cases of TAE for ureteral ectopic opening

症例	年	文献	年齢	性別	主訴	患側	Thom分類	病型	開口部位	術後在院日数	合併症
1	1990	7)	5	女	尿失禁	右	I	単一尿管異所開口	膻	不明	なし
2	2003	8)	11	女	尿失禁	左	I	単一尿管異所開口	膻	不明	微熱, 左背部痛
3	2004	9)	18	女	不明	左	I	単一尿管異所開口	膻	2	左背部痛
4	2010	10)	21	女	尿失禁	左	I	単一尿管異所開口	膻	不明	微熱, 腹痛
5	2016	11)	60	女	尿失禁	左	V	両側完全重複尿管, 左上位尿管異所開口	膻	不明	なし
6	2019	12)	30	女	尿失禁	左	III	左完全重複尿管, 左上位尿管異所開口	膻	3	なし
7	2020	自験例	22	女	尿失禁	左	III	左完全重複尿管, 左上位尿管異所開口	膻	2	なし

であり, 完全重複尿管に対して TAE を施行した症例は自験例が 3 例目であった。TAE 症例では, 3 例(症例 2~4)で微熱, 軽度の背部痛および腹痛を認めているが, いずれも対症療法で改善している。自験例を含めいずれも重篤な合併症を来たすことなく尿失禁は消失している。術後在院日数は記載のあるもので 2~3 日であった。遺残尿管の感染に関してだが, 異所性尿管の所属腎に対する腎摘除術または半腎摘除術では, 尿管は可及的遠位側での切除でよいとされる²⁸⁾一方, 術後に遺残尿管の感染, 膿瘍形成を来たす可能性があり²⁷⁾, 遺残尿管への尿の逆流や感染のために約 12% で遺残尿管の摘出が必要となったという報告もある⁴⁾。ただし遺残尿管に感染を来たした症例の多くは膀胱頸部と尿道への異所開口例であり, 膻へ異所開口していた症例では稀であったとされる⁴⁾。また異所性尿管による尿失禁に対して TAE を施行した報告はすべて膻開口であり, 遺残尿管に感染を来たした症例はなかった (Table 1)。このため異所性尿管の開口部が膻である場合は, TAE を積極的に考えてよいと思われる。

所属腎機能が残存している症例では TAE ではなく尿管膀胱新吻合術を考慮すべきと思われる。著明な腎嚢胞や高度の水腎症を合併しておらず, IVP で腎盂尿管の一部が描出される場合や造影 CT やシンチグラムで腎が描出される場合は, 所属腎機能は残存していると考えられている²⁹⁾。

感染の有無に関してだが, 感染を来たしている異所性尿管の所属腎に対して TAE を施行した報告は調べた限り見つからなかったが, そのような症例では TAE よりも所属腎に対する腎摘除術または半腎摘除術を選択すべきと思われる。

腎臓に対する TAE では, 腎臓の広範囲を壊死させると, 側腹部痛, 発熱, 嘔気などを TAE 後 1 日から 3 日にかけて起こすことがあると言われている³⁰⁾。腎癌で手術不可能な症例では疼痛や血尿の緩和目的で TAE が行われることもあるが, このような症例では壊死する領域が大きく, 合併症としての死亡率が 3%

に上るとの報告されている³⁰⁾。また TAE で塞栓する領域が増えると膿瘍を形成する可能性があると言われている³⁰⁾。このように腎臓に対する TAE では, 壊死させる領域が増えると合併症が増加するため, 壊死させる領域が大きい場合は TAE よりも所属腎に対する腎摘除術または半腎摘除術を選択すべきと思われる。

所属腎機能が低下している異所性尿管に対する治療として, TAE は腹腔鏡下手術と比較しても低侵襲で整容性に優れており, 小児や若年女性が多い本疾患において有用な治療選択肢であると考えられた。

結 語

完全重複尿管の異所開口による尿失禁に対して, TAE が奏効した 1 例を経験した。TAE は腹腔鏡下半腎切除術よりも低侵襲で整容性に優れており, 異所性尿管による尿失禁に対して有用な治療法の 1 つと考えられる。

本論文の要旨は第 242 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) 森 義則, 滝内秀和, 野島道生, ほか: 小児異所開口尿管 54 例の臨床的検討. 日泌尿会誌 **92**: 470-473, 2001
- 2) Mackie CG and Stephens FD: A correlation of renal dysplasia with position of the ureteral orifice. J Urol **114**: 274-280, 1975
- 3) 中村 繁, 日向泰樹, 久保太郎, ほか: 片側性尿管異所開口に合併する括約筋性尿失禁. 日小児泌尿会誌 **22**: 58-63, 2013
- 4) Plaire JC, Pope JCT, Kropp BP, et al.: Management of ectopic ureters: experience with the upper tract approach. J Urol **158**: 1245-1247, 1997
- 5) Suzuki K, Ihara H, Kurita Y, et al.: Laparoscopic nephrectomy for atrophic kidney associated with ectopic ureter in a child. Eur Urol **23**: 463-465, 1993
- 6) 青 輝昭, 須山一穂, 古畑誠之, ほか: 腹腔鏡下腎摘除術の経験. 北里医 **23**: 334-338, 1993

- 7) Groote BD, Laer PV, Maurus K, et al.: Embolization of ectopic kidney to control incontinence. *Pediatrics* **85**: 217-219, 1990
- 8) Kudoh K, Kadota M, Nakayama Y, et al.: Transcatheter arterial embolization therapy for a hypoplastic pelvic kidney with a single vaginal ectopic ureter to control incontinence: the usefulness of three-dimensional CT angiography using multidetector-row helical CT. *Cardiovasc Inter Rad* **26**: 479-481, 2003
- 9) Solinas A, De Giorgi F and Frongia M: Embolization of a hypoplastic kidney with a vaginal ectopic ureter in a case of pseudo-incontinence. *Arch Ital Urol Androl* **76**: 117-118, 2004
- 10) 大関孝之, 森 康範, 橋本 潔, ほか: 異所開口尿管を伴う低形成腎による尿失禁に対して TAE が著効した 1 例. *泌尿紀要* **56**: 645-649, 2010
- 11) Woo JH, Hyun D, Do YS, et al.: Transcatheter arterial embolization for life-long urinary incontinence associated with bilateral ureteral duplication with ectopia. *Cardiovasc Inter Rad* **39**: 1530-1532, 2016
- 12) Lal H, Yadav P, Tomar V, et al.: Selective renal segmental artery embolization for hydronephrotic upper renal moiety: simple alternative to standard surgical resection. *Turk J Urol* **45**: 162-165, 2019
- 13) 阿部明彦, 佐々木隆聖, 三品睦輝, ほか: 重複尿管を伴った尿管異所開口の 1 乳児例. *秋田医* **26**: 153-156, 1999
- 14) 岸 幹雄, 吉本 純, 松村陽右, ほか: Enhanced Computed Tomography により発育不全腎の部位診断が可能であった尿管異所開口の 1 例. *西日泌尿* **45**: 859-862, 1983
- 15) 寺田為義, 新川一雄, 内藤 威, ほか: 共通尿生殖洞を伴う尿管異所開口の 1 例—本邦尿管異所開口648例についての統計的観察—. *泌尿紀要* **34**: 508-513, 1988
- 16) 東田 章, 細川尚三, 島田憲次: 直腸肛門奇形に合併する尿路奇形の検討—とくに新生児・乳児期の取り扱いについて—. *日泌尿会誌* **86**: 1388-1393, 1995
- 17) Thom B: Harnleiter und Niereverdoppelung mit besonderer Berücksichtigung de extravasikalen Harnleiter Mündungen. *Zeitschr Urol* **22**: 417-468, 1928
- 18) 古野剛史, 柿崎秀宏, 柴田 隆, ほか: 単一異所開口尿管および所属腎に対する画像評価と体腔鏡手術. *Jpn J Endourol ESWL* **17**: 195-199, 2004
- 19) 上田修史, 杉元幹史, 笥 善行, ほか: 腹腔鏡下に摘出した尿管異所開口を伴う低形成腎の 1 例. *西日泌* **64**: 709-712, 2002
- 20) Kawauchi A, Fujito A, Naito Y, et al.: Retroperitoneoscopic heminephroureterectomy for children with duplex anomaly: initial experience. *Int J Urol* **11**: 7-10, 2004
- 21) 藤方史朗, 篠森健介, 二宮 郁, ほか: 成人女性における単一異所開口尿管を伴う低形成腎に対して後腹膜鏡下腎摘除術を行った 1 例. *西日泌尿* **68**: 504-507, 2006
- 22) 今尾哲也, 天野俊康, 竹前克朗, ほか: 右低形成腎を伴う尿管腔開口に対する後腹膜鏡下腎摘除術の経験. *長野赤十字病医誌* **20**: 47-49, 2007
- 23) 佐々木光晴, 佐竹洋平, 坂井清英, ほか: 腔開口の小児尿管異所開口 2 例に対する鏡視下腎摘除術の経験. *泌外* **21**: 847-851, 2008
- 24) 志田洋子, 鈴木葉子, 高橋健一郎, ほか: 尿路感染症を契機に診断した低形成腎を伴った尿管異所開口の女児 2 症例. *東女医大誌* **87**: 102-108, 2017
- 25) 富山栄輔, 中澤成晃, 田中 亮, ほか: 異所性尿管を伴う低形成腎に対し腹腔鏡下尿管全摘除術を行った成人女性の 1 例. *泌尿紀要* **64**: 219-223, 2018
- 26) 佐本征弘, 江口 賢, 長尾一公, ほか: 患者自身がネット検索により尿管異所開口を疑い受診した 1 例. *日農村医会誌* **66**: 585-588, 2018
- 27) 大関孝之, 安富正悟, 江左篤宣, ほか: 会陰部からの排膿を契機に診断された尿管異所開口の 1 例. *泌尿紀要* **58**: 453-456, 2012
- 28) Yeung CK, Liu KW, Ng WT, et al.: Laparoscopy as the investigation and treatment of choice for urinary incontinence caused by small 'invisible' dysplastic kidneys with infraspincteric ureteric ectopia. *BJU Int* **84**: 324-328, 1999
- 29) 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
- 30) Muller A and Rouvière O: Renal artery embolization-indications, technical approaches and outcomes. *Nat Rev Nephrol* **11**: 288-301, 2015

(Received on December 2, 2020)
(Accepted on March 24, 2021)