

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

大関 孝之¹, 森 康範¹, 橋本 潔¹
加藤 良成¹, 井口 正典¹, 沢井 ユカ²

¹市立貝塚病院泌尿器科, ²市立貝塚病院放射線科

A CASE OF URINARY INCONTINENCE DUE TO HYPOPLASTIC KIDNEY WITH AN ECTOPIC URETERAL OPENING: SUCCESSFUL TREATMENT WITH TRANSCATHETER ARTERIAL EMBOLIZATION

Takayuki OHZEKI¹, Yasunori MORI¹, Kiyoshi HASHIMOTO¹,
Yoshinari KATO¹, Masanori IGUCHI¹ and Yuka SAWAI²

¹The Department of Urology, Kaizuka City Hospital

²The Department of Radiology, Kaizuka City Hospital

We report a 21-year-old woman, who presented with a major complaint of urinary incontinence without dry time. On the basis of computed tomographic examination and vaginography, she was diagnosed as having a hypoplastic left kidney with a solitary ectopic ureteral opening on the left. Transcatheter arterial embolization of the renal artery using anhydrous ethanol was conducted for renal ablation. No postoperative complications were noted, and the symptoms of urinary incontinence were eliminated. Embolization of the renal artery for ablation of a hypoplastic kidney with symptoms can be achieved without laparotomy while causing little stress and few complications, with an outcome comparable to surgical nephrectomy. This procedure is expected to be adopted as a standard therapeutic modality in the future.
(Hinyokika Kiyo 56 : 645-649, 2010)

Key words : Ectopic ureter, TAE (transcatheter arterial embolization)

緒 言

異所開口尿管による尿失禁は、以前より種々の術式による観血的治療が施行されてきた。小児、女性に多く、近年低侵襲である事や整容の配慮から腹腔鏡下腎摘出術が選択されるようになってきている。しかし、開腹する事なく腹腔鏡手術よりもさらに低侵襲である腎動脈塞栓術（以下TAE）による治療報告は少ない。

今回、われわれは低形成腎を伴う異所開口尿管による尿失禁に対してTAEを安全に施行し、著効した1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：21歳，女性

主訴：尿失禁

既往歴・家族歴：特記事項なし

現病歴：生来 dry time のない尿失禁を認め他院受診。画像上左腎萎縮を指摘され、精査加療目的で他院より紹介となる。

現症：身長163 cm, 体重53 kg, 血圧108/64 mmHg, 脈拍72/分, 体温36.5℃, 胸腹部理学所見に異常なし。

検査所見：末梢血液；WBC $6.6 \times 10^3/\mu\text{l}$, RBC $481 \times 10^4/\mu\text{l}$, Hb 14.3 g/dl, Plt $20.6 \times 10^4/\mu\text{l}$ 。血液生化学検査；CRP 0.0 mg/dl, BUN 11.5 mg/dl, CRE 0.5 mg/dl, Na 138 mEq/l, K 4.1 mEq/l, Cl 103 mEq/l。

尿検査：PH 7.0, 蛋白（-）, 糖（-）, 潜血（-）, 白血球 <1/HPF, 赤血球 1~4/HPF。

パッドテスト：1回目17 g/回, 2回目23 g/回。

CT画像所見：左L2 levelに $20 \times 10 \times 10$ mm 大の低形成腎を認め、腎実質の一部に造影増強効果を認めた。動脈相では、右腎動脈分岐部の約1 cm 頭側に左腎動脈と考えられる左低形成腎方向へ分岐する細い動脈枝を認めた (Fig. 1 (A))。排泄相では、左腎杯の一部と考えられる点状の造影剤貯留と左腎実質の内下方に下方への線状影を伴う cystic lesion を認め、左腎盂、尿管であると考えられた (Fig. 1 (B))。

臨床経過：経陰的超音波検査および3D-CTで子宮に異常は認めず。膀胱鏡では左三角部形成不全であった。腔内タンポン挿入下にインジゴカルミンTM注射したが、6時間後のタンポン青染は認められず、膣への異所開口は確認できなかった。内診、膣鏡検査でも異所開口尿管は確認できず。腔内に Balloon catheter を挿入し膣造影を施行したところ、左膣円蓋部からL2

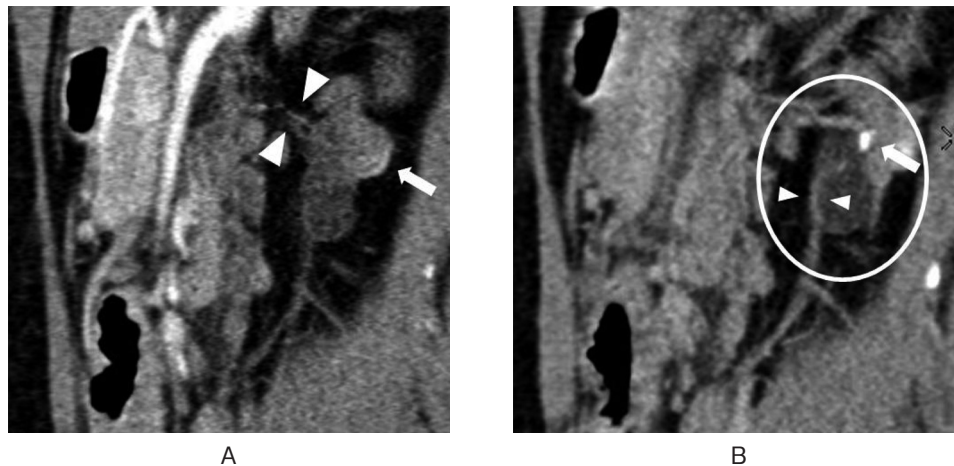


Fig. 1. Left oblique sagittal image parallel to the left kidney obtained by abdominal dynamic CT and MPR (multi-planar reconstruction). (A) Arterial phase: A contrast effect (➡) is evident in part of the renal parenchyma. A thin arterial branch (▲), coursing in the direction of the left hypoplastic kidney and believed to constitute the left renal artery, can be recognized about 1 cm cephalad from the bifurcation of the right renal artery. (B) Excretory phase: Dot-like accumulation of contrast medium (➡), presumably part of the left renal calyx, and a cystic lesion (○) with a linear downward profile (▲) located medio-inferiorly in the left renal parenchyma, are considered to constitute the left renal pelvis and ureter.

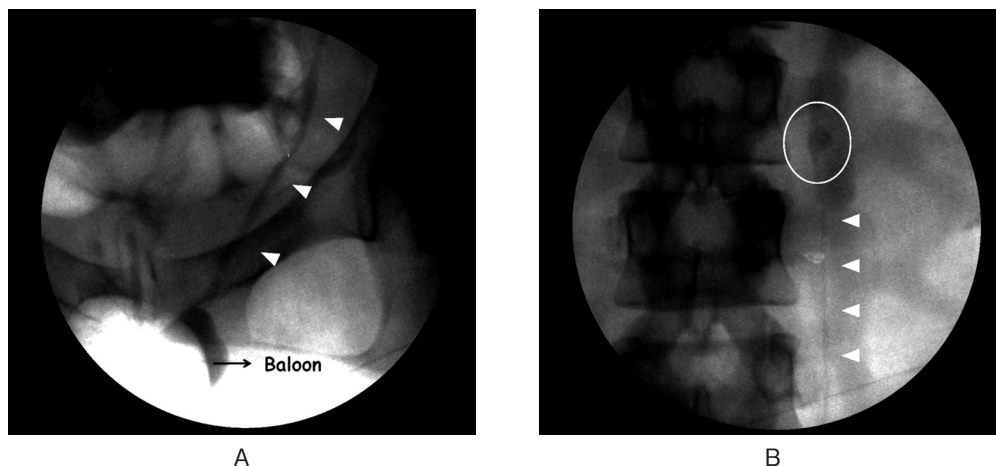


Fig. 2. Vaginography examination: Injection of contrast medium through a balloon catheter introduced into the vagina reveals left ureteral reflux (➡) from the left vaginal vault and the left hypoplastic kidney (○) at cranial level L2.

level の左低形成腎まで尿管逆流が確認された (Fig. 2)。以上より左単一腔異所開口尿管を伴う左低形成腎と診断した。3D-CT で左腎動脈が一本であることが確認され、TAE で治療可能と判断した。放射線科 consult し、家族同意のもと左腎機能廃絶目的に TAE 予定となった。

IVR 所見：左低形成腎を栄養する左腎動脈は右腎動脈分岐部上縁 level の大動脈から分岐していた。左腎動脈に 4Fr の catheter を留置し、無水エタノールと Lipidol® の 1 : 1 混濁液 1.5 cc にて TAE を施行した。術後の左腎動脈造影で低形成腎の stain が消失した (Fig. 3)。

術後経過：術後発熱もなく、合併症は認めなかった。術直後より尿失禁は消失した。術後 1 カ月の CT

画像で左低形成腎は造影されなかった (Fig. 4)。術後 1 年間、発熱や尿失禁、帯下の増量は認めず経過良好である。

考 察

尿管異所開口は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、中腎管 (Wolff 管) から尿管芽が発生し、将来永久腎となる後腎組織塊 (間葉組織) に向かって伸びる。中腎管から尿管芽の発症位置が正常より高いか、または尿管と中腎管の分離が正常に行われない場合に、その部位が膀胱三角部に取り込まれるのが遅れて尿管は膀胱よりも尾側に異所開口する。正常位置から外れた尿管芽は後腎組織塊の辺縁と接するが、ここは細胞密度が薄く組織も未発

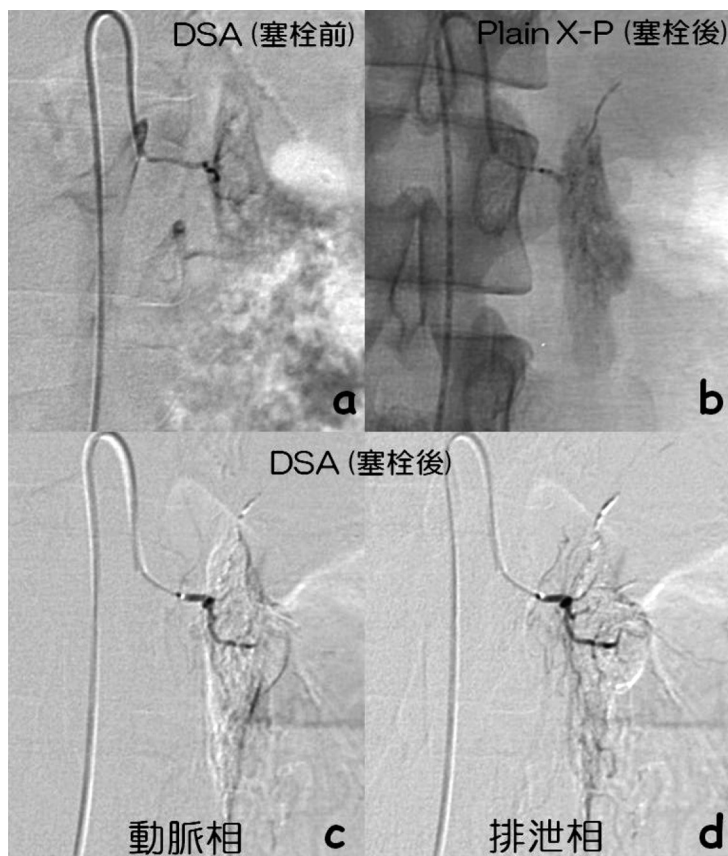


Fig. 3. DSA before (a) and after (c and d) embolization, and plain X-P (b) after embolization. (a) The thin left renal artery branching directly from the aorta, and the entire parenchyma of the hypoplastic left kidney are visualized. (b) Lipiodol is retained throughout the left hypoplastic renal parenchyma. (c) Arterial phase: The contrast medium fails to demonstrate the left renal parenchyma. (d) Parenchymal phase: Only the capsular artery that branches from the left renal artery, and not the left renal parenchyma, is visualized.

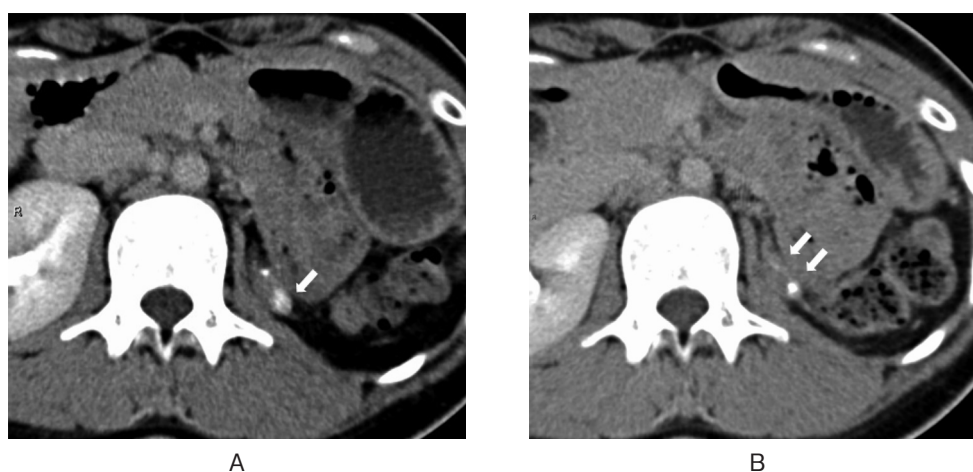


Fig. 4. Abdominal CT before and one month after the procedure. (a) A contrast effect is evident in part of the renal parenchyma (→). (b) Lipiodol persists throughout the entire parenchyma of the left hypoplastic kidney (→), but no contrast enhancement is evident.

達であるため、腎は正常に形成されずに低形成や異形成を示すと考えられる (bud theory¹⁾). 尿管芽が発症する部位付近から総排泄腔までの後腎芽は膀胱三角の形成に関与しているため、原則的には異所開口尿管がある側の膀胱三角から膀胱頸部の形成が悪い²⁾. 頻度

は500例に1例で、男女比は本邦では1:7、欧米では1:3で女性に多いとされる³⁾. その分類は一般にThom⁴⁾分類が用いられている. 本邦では単一腎盂から膣や前庭部に開口するもの (Thom I型) が多い^{5,6)} のに対し、欧米では重複腎盂の上腎由来尿管からの異

Table 1. Reported cases of hypoplastic kidney treated by renal arterial embolization

症例 No	報告者	年齢	性別	原疾患	塞栓腎	塞栓物質	予後	副作用
1	B De Droote ¹⁷⁾	5	女	尿失禁, 異所開口尿管	右腎	Polyvinyl Alcohol	治癒	なし
2	Kdoh K ¹⁸⁾	11	女	尿失禁, 異所開口尿管	左腎	Platinum coils	治癒	微熱, 左背部痛
3	Andrea Solnas ¹⁹⁾	18	女	異所開口尿管	左腎	Polyvinyl Alcohol	治癒	左背部痛
4	田端信忠 ²⁰⁾	14	女	腎性高血圧	右腎	Ethanol	治癒	微熱, 間欠的腹痛
5	自験例	21	女	尿失禁, 異所開口尿管	左腎	Ethanol	治癒	なし

所開口 (Thom III 型, V 型) が多いとされる⁴⁾, 本症例も左低形成腎, 右三角部形成不全を示し, 典型的な Thom I 型であった。

異所開口尿管の治療は外科的手術が基本であるが, 術式は患側腎と対側腎の腎機能評価により選択される。患側腎の腎機能が良好な例では尿管膀胱新吻合術も選択されうるが, 患側腎の腎機能不良を伴う場合は腎尿管摘出術あるいは半腎尿管摘出術が選択される。単一腎盂から膣や膣前庭部に開口する症例 (Thom I 型) の場合は腎機能が高度に低下しているため, 腎尿管摘出術が選択される。異所開口尿管は小児, 女性に多く, 腎尿管摘出術が適応となった場合, 近年低侵襲である事や整容的配慮から腹腔鏡下腎摘出術が選択されるようになってきた。青ら⁷⁾の報告を始め現在広く施行されている。しかし, 開腹する事なく腹腔鏡手術よりもさらに低侵襲であると考えられる TAE による治療報告は少ない (Table 1)。

腎臓領域での TAE の適応は, 腎癌では出血例を含めた手術不能例であり, それ以外の適応は良性疾患で, 外科的腎摘出しなくても TAE で治療可能な症例とされる⁸⁾。最近では腎機能廃絶を目的とした適応が拡大してきており, 腎血管性高血圧, 水腎症, 難治性ネフローゼ症候群, 難治性尿管皮膚瘻, 非可逆的な拒絶反応を示した移植腎が報告されている⁹⁾。

Table 1 に低形成腎に対し TAE を施行した報告例を記載した。いずれも女性, 片腎のみの低形成腎で, TAE 単独で完治している。

腎動脈に対する塞栓物質および方法については多くの報告があるが, 対象となる病変や臓器の特性, 塞栓すべき期間により使い分けられる。無水エタノールは糸球体まで動脈閉塞を伴う腎全体の組織壊死を起こすことから塞栓効果が高く, 完全な血流遮断が必要な腎血管性高血圧や水腎症, 腎悪性腫瘍に対して用いられる¹⁰⁾。腎機能廃絶目的に対しても塞栓効果の強い無水エタノールが最適とされる⁹⁾。低形成腎に対する塞栓物質についてまとめた報告はないが, 低形成腎に起因する症状を改善するためには完全なる血流遮断が必要であり, 側副血行路を発達させる可能性のある金属コイルや再開通をきたしやすいゼルフォーム¹¹⁾より, 無水エタノールが有用であると考えられる。その

他の塞栓物質として, プラスチックスポンジで永久塞栓物質である polyvinyl alcohol がある。血液内での形状変化はなく, キャリプレートされた径よりも細い血管へ流入しないといった特徴をもつが, 本邦では入手困難である¹²⁾。

腎に対する TAE の副作用には, 腎不全, 多臓器の梗塞, 一過性の側腹部痛, 腰痛, 発熱, 嘔気・嘔吐をきたす塞栓後症候群, 腎膿瘍がある¹³⁾。Table 1 に示す症例では, 3 例 (No 2~4) において副作用が報告されているが, いずれも微熱, 軽度の一過性側腹部痛, 腰痛のみで, 対症療法で改善している。低形成腎に対する TAE において合併症が少なく, 軽度である理由として, 塞栓領域が狭く壊死範囲が少ないことや使用する塞栓物質の量が少ないことが考えられる。本症例において Lipidol® を混和したのは, 血管へのアルコールの分布を均一にする効果¹⁴⁾および透視下に視認性の向上を得るため¹⁵⁾であった。

異所開口尿管を伴う低形成腎に対する腹腔鏡手術では, 尿管は可及的にのみ切除するとの報告が多い¹⁶⁾。TAE でも同様に尿管は残存する。本症例では術後, 下部尿路感染に関して細心の注意を払い経過観察しているが, 術後 1 年間の経過で尿路感染症や帯下の増加などの局所感染を示す症状は認めていない。Table 1 に示す症例においても同様であった。

症状を伴う低形成腎の機能廃絶を目的とした TAE は, 開腹することなく, 低侵襲であり合併症も少ない。観血的腎摘出に相当する効果がえられ, 今後同様の症例追加, 検討により腹腔鏡手術と共に標準的治療になることが期待される。

結 語

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 例を経験した。低形成腎に対する TAE は腹腔鏡手術よりもさらに低侵襲であり, 合併症も少なく, 今後標準的治療になることが期待される。

本論文の要旨は第211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) Mackie CG and Stephens FD: Duplex kidneys: a correlation of renal dysplasia with position of the ureteral orifice. *J Urol* **114**: 274-280, 1975
- 2) 上岡克彦: 異所開口尿管による尿失禁. *小児外科* **36**: 1171-1175, 2004
- 3) 安部明彦, 佐々木隆生, 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
- 4) Thom B: Harnleiter-und Nierenverdoppelung mit besonderer Beruecksichtigung der extravesicalen Harnleitermuendungen. *Zeitschr. Urol* **22**: 417-468, 1928
- 5) 奥山明彦, 永野俊介, 高羽 津, ほか: 尿管異所開口, 本邦330例および当教室26例の臨床的検討. *泌尿紀要* **18**: 319-325, 1972
- 6) 森 義則, 竹内秀和, 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
- 7) 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
- 8) 乳原善文, 比嘉康志, 荻田 学, ほか: 多発性嚢胞腎を含めた腎臓疾患に対する腎動脈塞栓術治療ガイド. *腎と透析* **62**: 562-574, 2007
- 9) 山田隆之: IVR 手技, 合併症とその対策, 腎機能廃絶術. 石橋忠司編. 第1版, PP 203-206, MEDICAL VIEW, 東京, 1998
- 10) 松浦 里, 阪田章聖, 一森敏弘, ほか: 両側腎動脈塞栓術を施行した難治性ネフローゼ症候群の1例. *徳島赤十字病医誌* **13**: 49-53, 2008
- 11) 小川裕二郎, 平山浩一, 下畑 誉, ほか: 症例による透析患者の画像診断 腎嚢胞・腎周囲出血に対する血管塞栓療法が奏効した維持血液透析症例. *臨透析* **25**: 751-757, 2009
- 12) 堀 信一: 血管塞栓術と塞栓物質の基礎. *臨放* **51**: 1271-1274, 2006
- 13) 山田隆之: IVR 手技, 合併症とその対策, 腎, 副腎腫瘍. 石橋忠司編. 第1版, PP 172-179, MEDICAL VIEW, 東京, 1998
- 14) Wright KC, Loh G, Wallace S, et al.: Experimental evaluation of ethanol-ethiodol for transcatheter renal embolization. *Cardiovasc Intervent Radiol* **13**: 309-313, 1990
- 15) 豊田尚之, 柿沢秀明, 稗田雅司, ほか: 腎動脈奇形・動脈瘤, 腎腫瘍, 嚢胞腎. *臨放* **51**: 1583-1590, 2006
- 16) 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 infrasphincteric ureteric ectopia. *BJU Int* **84**: 324-328, 1999
- 17) De Groote B, Van Laer P, Maurus K, et al.: Embolization of ectopic kidney to control incontinence. *Pediatrics* **85**: 217-219, 1990
- 18) 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 Intervent Radiol* **26**: 479-481, 2003
- 19) 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
- 20) 田端信忠, 伊豆亜加音, 井上智弘, ほか: 無水エタノールによる腎動脈塞栓術が著効した低形成腎による腎性高血圧の1女児例. *小児高血圧研究会誌* **5**: 26-29, 2008

(Received on May 31, 2010)

(Accepted on July 16, 2010)