

石灰化を伴った腎無形成の1例

岩手医科大学医学部泌尿器科学教室（主任：大堀 勉教授）

岩 勳 孝, 逢 坂 宇 一

山 田 行 夫, 沼 里 進

久 保 隆, 大 堀 勉

RENAL APLASIA WITH CALCIFICATION :
REPORT OF A CASETakashi ISURUGI, Uichi OHSAKA Yukio YAMADA, Susumu NUMASATO,
Takashi KUBO and Tsutomu OHORI*From the Department of Urology Iwate Medical University, School of Medicine
(Director: Prof. T. Ohori, M. D.)*

Renal agenesis seen in a 27-year-old man was reported. He came with chief complaint of left flank pain and transferred to us because of calcified shadow in the left renal area on KUB.

Intravenous pyelography did not visualize pelvis, calyces or ureter on the left side. Retrograde ureterography showed the blind-ending ureter on that side. Aortography demonstrated left renal artery which was incomplete. Left nephrectomy was performed under the working diagnosis of contracted kidney with calcification. The specimen appeared as a cystic mass with partial calcification to which the artery, previously demonstrated by aortography, was observed to enter along with the renal vein. Postoperatively, his pain disappeared. Pathohistological examination proved it to be renal agenesis.

Interestingly enough, electromyography recorded retrograde peristaltic discharge from the blind-ending ureter.

In this patient, there were no other congenital abnormalities in the genitourinary tract or hypertension.

結 言

一般に腎・腎盂の奇形の発生頻度は他の臓器のそれに比してかなり高いものであるが、その奇形自体は症状を呈することが少なく、臨床上問題にならない場合が多い。しかし尿路感染、結石形成などの合併症の発生率が正常腎に比べて高く、難治性の尿路感染症症例について腎盂造影をおこない、腎・腎盂の奇形を偶然発見することもしばしばである。

近年、X線による尿路造影法、血管造影法、腎シンチグラムなどの診断技術の進歩により、これまで見のがされていたような自覚症状を欠く腎奇形が数多く発見されるようになった。私たちも日常種々の腎の奇形

を経験するが、今回は手術および組織検査により腎無形成と診断された1症例を報告するとともに若干の考察を加えたい。

症 例

患者：27歳、男子

初診：1972年12月6日

主訴：左側腹部痛

既往歴：10年前に5mの高さから転落して腰部を打撲、3カ月入院した。

現病歴：1972年10月末より、頻尿、尿混濁に気づき、同時に左側腹部痛もあった、同年11月初めに釜石

市の某病院を訪れ、左側腹部の異常な石灰化陰影を指摘され、また、排泄性腎盂造影で左腎の造影が得られなかったため、左腎結石の疑いで当科を紹介された。なお、左側腹部痛は漸次増強することであった。

現症：体格・栄養中等度、眼瞼・眼球結膜に貧血、黄疸を認めない。胸部打聴診上異常を認めず、腹部でも異常所見はない。両側腎はともに触知されない。両側尿管走行部および膀胱部に圧痛なく、外陰部、睪丸、副睪丸に異常を認めない。

血圧は 120/70 mmHg と正常であった。

入院時一般検査：血液検査；赤血球数 422×10^4 、ヘマトクリット値 41%、血色素量 14.3 g/dl、白血球数 6200、血小板数 395,000、出血時間 1 分、凝固時間開始 4 分 完結 19 分。血液化学検査；血清総蛋白質 7.4 g/dl、尿素窒素 10.7 mg/dl、総コレステロール 162 mg/dl、Na 140.0 mEq/L、K 4.6 mEq/L、Cl 103.4 mEq/L、Ca 5.2 mEq/L、酸性フォスファターゼ 2.1 KA 単位、アルカリ性フォスファターゼ 5.1 KA 単位、GOT 20 単位、GPT 20 単位、LDH 185 単位。尿検査；尿外観 黄褐色、清、尿比重 1.027、pH 6.0、蛋白（－）、糖（－）、尿沈渣赤血球 0～1 コ/数視野、白血球 5～6 コ/各視野、扁平上皮 0～1 コ/数視野、尿培養（－）、PSP 試験 15 分値 21% 30 分値 34% 60 分値 44% 120 分値 46%。Fishberg 試験 最高比重 1.029。

膀胱鏡所見：膀胱容量 350 ml、膀胱粘膜には充血、浮腫などの異常所見はなく、左右尿管口の位置、形態とも正常で収縮も良好であった。膀胱三角部も左右対称で形態的異常も認められなかった。しかし左尿管口からの尿線はなく、青排泄試験でも青の排泄は認められなかった。

X線検査所見：腎部単純撮影では左側腎部に 2×3 cm の楕円形の石灰化陰影を認めるほか異常はない（Fig. 1）。排泄性腎盂造影では左腎は全く造影されないが、右腎は形態、機能とも正常であった。しかし右の腎影は代償性の腫大を呈していた（Fig. 2）。そこで左側尿管口より尿管カテーテルを挿入し、逆行性腎盂造影を試みた。尿管カテーテルは尿管口より 9 cm で挿入不能となり、造影剤を注入しても腎盂像は得られなかった（Fig. 3）。後腹膜気体送込法を併用した腹部大動脈造影では右腎の輪郭は明瞭で、右腎動脈も正常であったが、左腎はその陰影を欠き、左腎動脈は左腎部の石灰化陰影をとりかこむように分布していた（Fig. 4, 5）。レノグラム、腎シンチグラムでは左腎の機能が全くないことが判明した（Fig. 6, 7）。

尿管筋電図所見：環状双極誘導導子を経膀胱鏡的に左尿管口より 9 cm まで挿入し、土田の方法¹⁾で尿管筋電図を記録した（Fig. 8）。誘導直後より逆蠕動放電が記録されたことより、この盲端に終っている尿管が蠕動運動を営んでいることが証明された。この蠕動放電の間隔は 26 ± 3 秒ごとに定期的に発生していたが、ときに放電が脱落することもあった。

以上の諸検査所見とくに逆行性腎盂造影像および左腎動脈の造影像より石灰化を伴った左側萎縮腎の疑診のもとに 1972 年 12 月 22 日に左腎摘出術をおこなった。

手術所見：左側腰部斜切開により後腹膜腔に達し Gerota 膜を切開、左腎を探索したところ正常の腎は発見できなかったが、脂肪組織につつまれた嚢腫様の腫瘤が認められた。この腫瘤の上部は骨様に硬く触れ、内側には動静脈はいり込み、また内側より下方に向かって尿管様の索状物が走行していた（Fig. 9）。そこでまず、尿管様の索状物を追求し、下部尿管との関係を検索したが、この索状物は総腸骨動脈の高さで追求不能となった。次いで内側より腫瘤にはいり込む動静脈を結紮切断し、腫瘤を摘出した。また、下部尿管を露出し、尿管が盲端に終っていることを確認し、最後に正常な左副腎の存在も確認した。

摘出標本の肉眼的所見：大きさ $7.5 \times 4 \times 3$ cm、重量は 35 g であった。表面は凹凸不平等米粒大から鳩卵大の嚢胞が多数存在した。形態は腎に類似しその内側に腎盂を思わせる部分があり、それが尿管様の索状物に連なっていたが、両者ともに内腔は存在しなかった。またこの腫瘤の上極部には石灰化が認められたがこれは多数存在する嚢胞の 1 つの嚢胞壁に石灰沈着が起こったものと思われた。剖面にも小嚢胞が多数認められ、嚢胞の内容は黄色透明であった。なお、肉眼的には腎構造を示す部分はなかった（Fig. 10）。

病理組織学所見：摘出した腫瘤の中央部の腎実質と思われる部分には糸球体はもちろん機能を有する尿細管も認められなかった。腫瘤は結合織に富み、その間に管腔構造が認められ内腔は単層あるいは多層の上皮細胞によって覆われていた。また一部には尿細管に類似した腺管をも認めた（Fig. 11）。

術後経過：手術創は一次的に閉鎖、治癒し、術後経過は良好であった。また手術前に訴えていた側腹部痛は消失し、術後 22 日目に退院した。

考 察

1928 年 Fortune²⁾ は腎の発育上の奇形を病理解剖学的に腎無発生 renal agenesis、腎無形成 renal



Fig. 1. 腎部単純撮影
左側腎部に楕円形の石灰化陰影を認める。



Fig. 2. 排泄性腎盂造影
左側腎盂は造影されず、右腎は代償性に腫大している。



Fig. 3. 逆行性腎盂造影
左側尿管は盲端に終わっている。

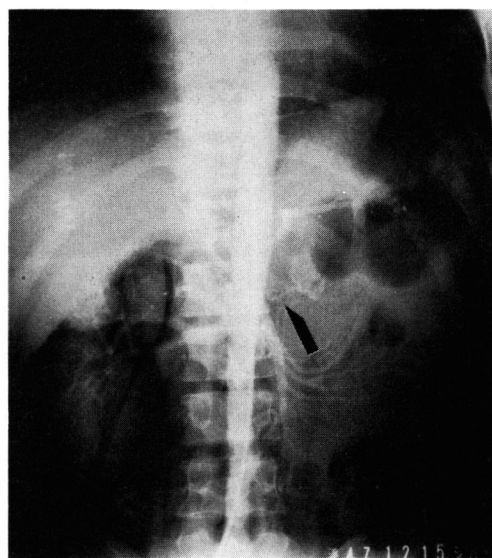


Fig. 4.
右側腎動脈は正常、左側腎動脈は不完全ながら認められる (→印)。

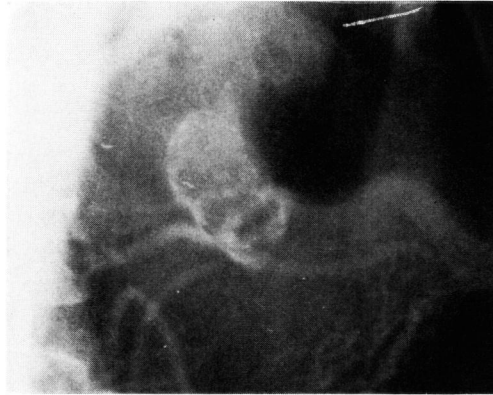


Fig. 5. 左腎動脈
左側腎部の石灰化陰影をとり囲むように分布している。

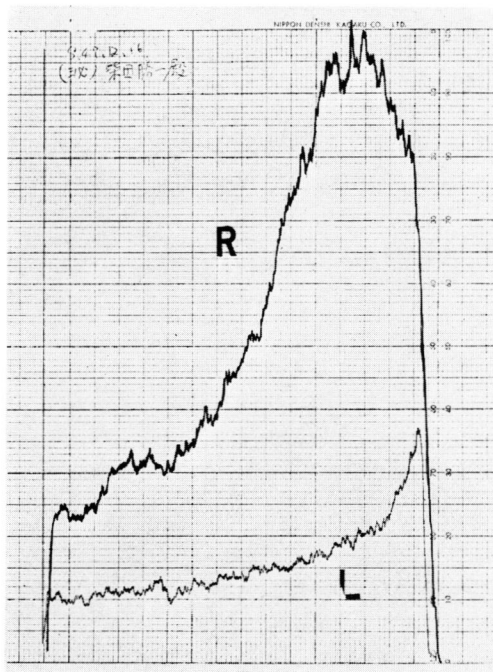


Fig. 6. レノグラム
右腎は正常、左腎は無機能型

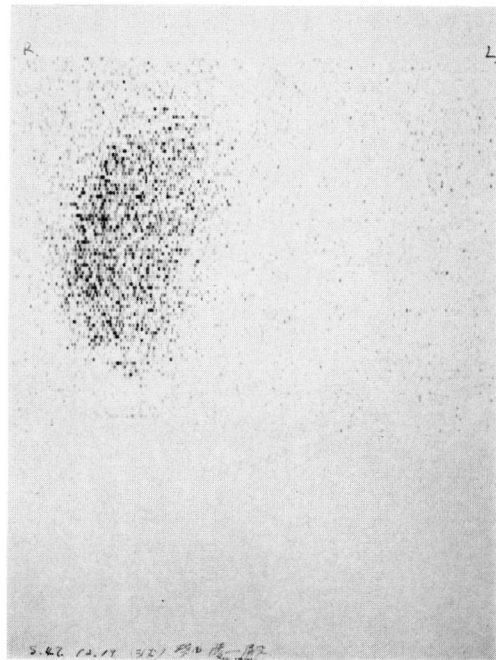


Fig. 7. 腎シンチグラム
左腎の uptake が全く認められない。

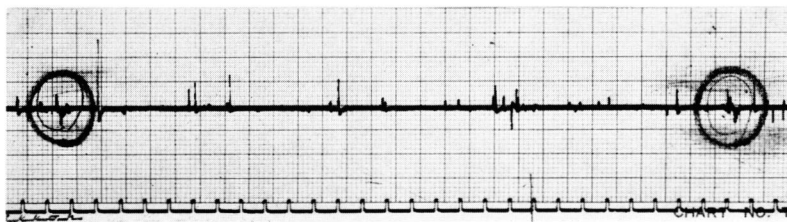


Fig. 8. 尿管筋電図

放電間隔	26 ± 3 秒	振 幅	0.36 ± 0.04 mV
持続時間	0.4~0.8 sec	伝播速度	33~50 mm/sec
双極誘導	(電極間距離: 10 mm)	時 定 数	0.3/sec
記録速度	5 mm/sec	Calibration	1.5 mm=1 mV

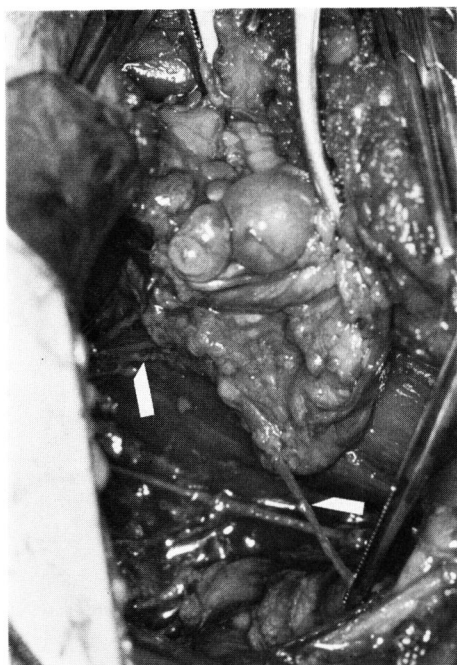


Fig. 9. 手術所見

左腎部に多胞性の嚢胞状の腫瘍が存在した。下方には、尿管様の索状物、内側には動静脈を認めた（→印は上が動静脈、下は尿管）。

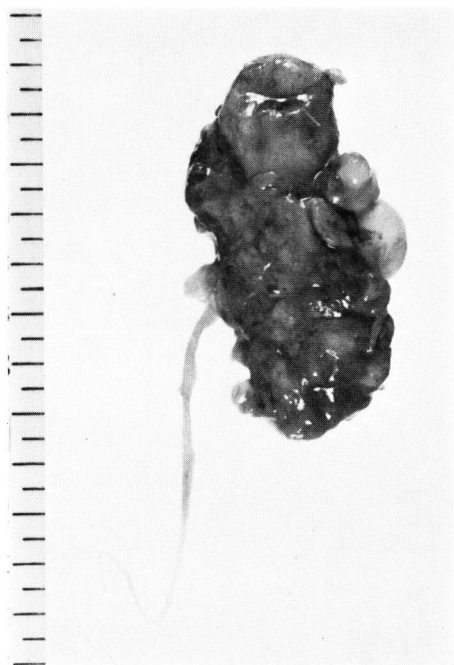


Fig. 10. 摘出標本

摘出物は、腎に類似し、腎盂、尿管様のものも認められるが、正常の腎構造を有せず、嚢胞が多数存在し、腎盂、尿管も内腔がなかった。

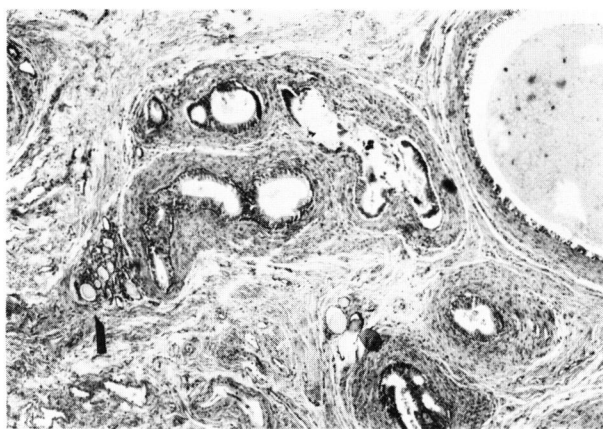


Fig. 11. 病理組織学所見

糸球体、および尿管は認められず、単層あるいは多層の上皮に内腔を覆われた管腔構造を認める。また一部に尿管に類似した管腔を認めた（→印）。

aplasia, 腎形成不全 renal hypoplasia の3つに分類した。それによると、腎無発生は腎の完全欠如、腎無形成は腎が未発達（rudimentär）で腎としての固有の機能を有しないもの、腎形成不全は腎が先天的に小さいが、なお腎としての機能を営んでいるものと定義している。

本邦におけるこの種の奇形は1889年の山極³⁾の報告

が最初であるが、以来その定義に混乱を生じ、前記の3者を同意義にとり扱っているものも少なくない。1935年土屋⁴⁾はこの定義上の混乱に対して次のような見解を示している。すなわち Fortune のいうごとく agenesis, aplasia, hypoplasia の3種に分類するのは一見つづろがよいようにみえるが、臨床的にはこれら3者は区別がつかないことが多く、したがって腎が

欠損する場合には agenesia あるいは aplasia として同一に解し、腎が存在した場合にはその機能の有無にかかわらず hypoplasia としたほうが簡単でよいといっている。その後1954年 Burkland⁹⁾ は Forture の分類を一步すすめて次のように定義づけた。agenesia は器官の欠損すなわち腎組織の痕跡も存在しないもの、aplasia は真の腎ではないが、かすかに、あるいは不十分に発育した腎様の組織があり、腎盂は欠損し、尿管は存在しても不完全でしばしば痕跡的に認められ、さらに腎様の組織は線維組織の無構造なかたまりから成り、その中に嚢胞が存在し、あるものは石灰が沈着しているものもあり、hypoplasia は本質的には正常の構造を有する腎であるが、その大きさが正常腎に比べて 1/3~1/6 になったものであると述べ、さらにかれは腎部から採取した組織をより精密に検索すれば agenesia の症例は減り、その分だけ腎無形成が増加するだろうと述べている。このような病理解剖学的な診断を臨床的に下しえなかった時代には、agenesia aplasia, hypoplasia の3疾患を混同して考えたのもやむをえないと思われるが、しかし白石ら⁶⁾ がいうように現在では腎盂造影法、後腹膜気体送込法、腎動脈造影法、レノグラム、レノシンチグラムなどの診断技術の発展によりある程度は臨床的にこれら3者を鑑別できるようになり、また手術症例も増え、病理組織学検査をおこなう症例も増加してきているので今後はこのような定義上の混乱は少なくなるであろう。また実際にも病理学的に別疾患とされているものを同一疾患名で呼ぶのは不合理であり、明瞭に区別されるべきであるといわれている⁷⁾。

私たちの症例は、腎に類似した組織が存在したこと、その一部が嚢胞状であったこと、嚢胞の石灰化が認められたこと、腎盂、腎杯が存在しなかったこと、尿管は存在したが不完全で盲端に終り、それより上位が索状であったこと、組織学的にも小嚢胞が認められ、しかも糸球体、機能を有する尿管管が存在しなかったことなどから Burkland のいう renal aplasia と診断した。

つぎに尿管筋電図についてであるが、先天性単腎症における尿管筋電図はすでに土田ら⁸⁾ の報告があり、盲端に終っている尿管において逆蠕動放電が記録され、しかも尿管内圧の上昇も認め、明らかに腎無形成における不完全な尿管においても蠕動運動が起こると述べている。

私たちの症例では、患側の尿管口の運動も認められ、しかも尿管筋電図で逆蠕動放電が記録されたことから、盲端に終っている尿管の蠕動運動が証明された

わけである。

以下、腎無形成の発生頻度、性差、症状、治療等について考察を加えてみる。

1. 発生頻度：前述のごとく、agenesia, aplasia, hypoplasia という言葉が混乱して用いられていたもので、これら3者の発生頻度を別々にしらべることはむずかしい。

Compbell⁹⁾ によると、hypoplasia と agenesia はだいたい同じくらいの発生頻度で、19,046例の乳児および小児の剖検中33例（1：577）、32,834例の成人の剖検中79例（1：462）であり、両者を合計すると499人（約500人）に1人の割合で hypoplasia を認めたと述べている。1960年 Arnold¹⁰⁾ は全世界の文献を集積して1,027,904例の剖検について検討し、先天的な偏腎の欠損は1,286人に1人の割合で認められたと述べている。また1944年 Nation¹¹⁾ は27,000例の剖検中14例、すなわち1：1,929の割合であったと報告している。本邦においては、土屋ら³⁾ は1,500名の膀胱鏡検査で1例、あるいは1,000名の患者に対して1例ぐらいの割合であろうと推測している。

2. 性差：Illyés¹²⁾ は3：14で女性に圧倒的に多いとしているが、Nation¹¹⁾ は18：9で男性に多いと述べている。本邦では斉藤ら¹³⁾ は17：25で女性に多いとしている。私たちの教室では今回の症例（男性）の他に女性例を1例経験している¹⁴⁾。

3. 左右差：Nation¹¹⁾ は左右差はないと記載しているが、斉藤ら¹³⁾ は26：17で左側がやや多いと述べ、岸本ら¹⁵⁾ も49：46で左側に多いと述べている。また杉村¹⁶⁾ は左右差なしと報告し、私たちの教室で経験した症例は左側の症例のみであった。

4. 合併症：Nation¹¹⁾ によれば、女性に44%、男性には11%に性器の奇形の合併を認め、またほとんどすべての症例に高血圧を認めたが、それが腎の奇形によるものかどうかは不明であったと述べている。反対側の腎の二次的合併症も多いとされており、Winter¹⁷⁾ によると腎炎、結石、結核、腫瘍などの対側腎の合併症が38%にみられたという。

5. 症状：腎無発生は一般的には無症状であるが、対側腎の二次感染あるいは盲端に終っている尿管の感染により、膿尿、発熱を認めることがある。また、ときには腰痛を訴えることがあるが¹⁸⁻²⁰⁾、その原因として盲端尿管の緊張²¹⁾や、嚢胞状腫瘍の周囲組織圧迫あるいは嚢胞の内容液貯留による緊張²²⁾などが考えられている。また Merz ら²³⁾ は、腎無形成の症例で嚢胞状腫瘍が増大し、触知可能であった2例を報告している。私たちの症例は、左側腹部痛を訴えて入院し、手

術により疼痛の消失をみたので、やはり嚢胞状腫瘍に起因した疼痛であったと考えている。

6. 診断：腎無発生の症例では、患側尿管の欠如をみることが多く、したがって膀胱三角部の患側の欠損もみられる。しかし、腎無形成では不完全ながら尿管が存在することが多く、膀胱三角部も正常のことが多い。しかし、患側尿管からの尿線および青排泄は認められない。尿管の異所開口が否定され、しかも一侧の尿管口および膀胱三角部が欠損していればいちおう腎無発生と考えてよいとされている²⁴⁾が、一侧の尿管からの尿線がなく、青排泄がみられなくとも腎無形成と診断することはできず、したがって腎無発生とは異なり膀胱鏡検査のみでは腎無形成の診断は下しえない。

つぎにX線診断法であるが、腎部単純撮影および後腹膜気体送込法では患側の腎陰影がみられず、ときには患側腎盂に石灰化陰影をみることがある。排泄性腎盂造影に関しては、夏目ら²⁵⁾はLongoら²⁴⁾の論文を用いて、1) 患側の腎盂、腎杯、尿管が造影されない、り引2) 対側腎輪郭の腫大、3) 腰筋の不对称、4) 対側腎輪郭の腫大と腎盂、腎杯の大きさが比例しない、5) 5～10%には対側腎の位置あるいは回転の異常がみられる、などの所見を腎無発生および腎無形成の特徴としてあげている。逆行性腎盂造影では腎無形成の場合、盲端に終る尿管あるいは小嚢胞状の腎盂が造影される。

大動脈造影では患側腎動脈が描出されないのが普通であるが、腎無形成では後腎遺残物に大動脈より動脈が分岐していることがあり、このような場合には発育不全の腎動脈が造影される。私たちの症例では、大動脈造影法で患側の腎動脈が造影され (Fig. 4, 5)、手術で、この動脈を確認している (Fig. 9)。対側腎動脈は正常のことが多いが、ときには位置異常による腎動脈の転位を認めることもある。

レノグラム、レノシンチグラムでは当然のことながら患側腎は無機能型を呈する。

腎無形成か腎無発生かの鑑別は最終的には手術が必要であり、摘出組織の慎重な組織学的検索によりはじめて確定診断がなされるべきである。

7. 治療：本症は無症状である場合は全く気づかれないことが多く、したがってこのような場合には治療の必要はない。しかし、腰痛、発熱その他の症状が出た場合には診断を確定したうえで手術をおこなうべきであると考えらる。

結 語

27歳の男子にみられた左腎無形成の1例を報告し

た。本症例の主訴は左側腹部痛であり、左腎部に石灰化陰影があることから、左腎結石として当科に紹介された。腎部単純撮影で左腎部に石灰化陰影を認め、IVPでは左腎盂、腎杯、尿管は造影されず、逆行性腎盂造影で盲端に終る左側尿管が証明された。大動脈造影では、不完全ながら左腎動脈が認められた。石灰化を伴った左側萎縮腎の疑診のもとに手術を施行し、嚢胞状で、一部石灰沈着を有する腫瘍を摘出したが、この腫瘍には、大動脈造影法で認められた動脈および静脈がはいり込んでいるのが確認された。手術後には主訴である左側腹部痛は消失した。

摘出物の病理組織検査をおこなった結果、腎無形成であることが判明した。なお、本症例においては、左側の盲端尿管の筋電図を記録し、逆蠕動放電であることを証明した。また、本症例には尿路、性器の合併症はなく、高血圧症も認められなかった。

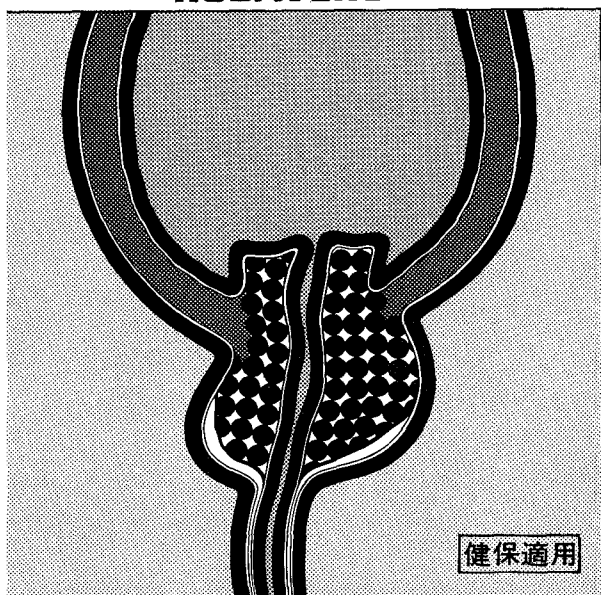
(本症例の要旨は日本泌尿器科学会第168回東北地方会にて口演発表した。)

文 献

- 1) 土田正義・ほか：日泌尿会誌，55：648，1964.
- 2) Fortune, C. H. : Ztschr. Urol. Chirurg., 25 : 91, 1928.
- 3) 山極勝三郎：東京医学会雑誌，3：1408，1889.
- 4) 土屋文雄・ほか：皮泌誌，37：207，1935.
- 5) Burkland, C. E. : J. Urol., 71 : 1, 1954.
- 6) 白石恒雄・ほか：泌尿紀要，11：615，1965.
- 7) 柿崎 勉・ほか：日本泌尿器科学全書，2巻I；12，金原出版，東京，1960.
- 8) 土田正義・ほか：日泌尿会誌，56：562，1965.
- 9) Campbell, M. F. et al. : Urology, II ; 1416, Philadelphia, London and Toronto, W. B. Saunders Co., 1970.
- 10) Arnold, J. H. : J. Urol., 84 : 510, 1960.
- 11) Nation, E. F. : Surg. Gynec. & Obst., 79 : 175, 1944.
- 12) Illyés : 13) より引用.
- 13) 齊藤幸熙・ほか：泌尿紀要，2：157，1956.
- 14) 長根 裕：日泌尿会誌，62：338，1972.
- 15) 岸本 孝・ほか：日泌尿会誌，50：232，1959.
- 16) 杉村克治：内科，20：149，1967.
- 17) Winter : 7) より引用.
- 18) Sabin, H. S. et al. : New Eng. J. Med., 224 : 598, 1941.
- 19) MacKenzie, D. W. et al. : Surg. Gynec. &

- Obst., **46**: 42, 1928.
- 20) Ainsworth, T. : South. Med. J. : **29** : 619, 1936.
- 21) Engel, W. J. : J. Urol., **42** : 674, 1939.
- 22) Gutierrez, R. : Arch. Surg., **27** : 686, 1933.
- 23) Merz, H. O. et al. : J. Urol., **63** : 959, 1950.
- 24) Longo, V. J. et al. : J. Urol., **68** : 63, 1952.
- 25) 夏目 修・ほか：臨床皮泌, **20** : 23, 1966.
(1974年7月22日迅速掲載受付)

ROBAVERON®



前立腺肥大症に伴う排尿障害の 治療に！

ロバベロン

前立腺肥大症治療剤

ロバベロンは性ホルモンおよび蛋白質を含まない成熟豚前立腺抽出物の水溶性注射剤です。

適 応 症 前立腺肥大症による排尿困難、頻尿、尿線細少、排尿痛、残尿および残尿感。

包 装 1 ml×10 アンプル

使用上の注意 説明書を参照下さい。



輸入発売元

日本商事株式会社
大阪市東区石町2丁目30番地

製 造 元

ロバファルム社
(スイス・バーゼル)