

## 膀胱腫瘍を合併した融合性骨盤腎 (塊状腎) の1例

八尾市立病院泌尿器科 (医長: 山口哲男)

入谷 純光, 吉本 充, 山口 哲男

大阪市立大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 前川正信教授)

前 川 正 信

### A CASE OF FUSED PELVIC KIDNEY (LUMP KIDNEY) WITH INVASIVE BLADDER TUMOR

Yoshiteru IRITANI, Mitsuru YOSHIMOTO and Tetsuo YAMAGUCHI

*From the Department of Urology, Yao Municipal Hospital*

Masanobu MAEKAWA

*From the Department of Urology, Osaka City University School of Medicine*

A case of fused pelvic kidney, in a 67-year-old woman is presented. The patient also had a bladder tumor that had invaded the bladder wall. The renal anomaly was confirmed by drip infusion pyelography, computed tomography scanning, (CT-scan) and angiography. The CT-scan showed lump kidney with an aplastic right kidney anterior to the sacrum. Two renal arteries derived from the right common iliac artery were demonstrated by pelvic-angiography.

The right ureter was not identified during the total-cystectomy. The left ureter was fixed firmly to the surrounding tissues and its free portion was less than 7 cm long. Thus left uretero-cutaneostomy was selected for the formation of the urinary diversion.

(Acta Urol. Jpn. 35: 1041-1045, 1989)

**Key words:** Fused pelvic kidney, Bladder tumor, Total cystectomy, Urinary diversion

#### 緒 言

種々の診断技術の向上に伴い、先天性疾患が発見される頻度も増加しつつある。しかし、融合性骨盤腎はいまだに稀な奇型である。

今回私たちは、融合性骨盤腎に膀胱全摘を要する膀胱腫瘍を合併した症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

#### 症 例

患者: 67歳, 女性

初診: 1987年5月18日

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 64歳, 膝関節変形性関節症

現病歴: 1987年3月頃より頻尿を訴え、某医にて腎盂腎炎の診断で経過観察されていた。同年5月18日に肉眼的血尿を認め、当科を紹介された。

入院時現症: 体格中等。栄養良好 (やや肥満)。胸部理学所見に異常を認めない。腹部触診では両側腎を触知しない。下腹部触診では肥満のため、膀胱は触知不能であった。

入院時検査成績: 一般検査所見; 血圧 130/80 mmHg, 血沈1時間値 35 mm, 2時間値 82 mm, 血清梅毒反応ガラス板法陽性, TPHA 2,560 dils. 血液所見; RBC  $422 \times 10^4/\text{mm}^3$ , WBC  $7,100/\text{mm}^3$ , Ht 39.7%, Hb 12.7 g/dl, Plt  $31.0 \times 10^4/\text{mm}^3$ . 血液化学所見; TP 6.7 g/dl, TTT 1.6 u, ZTT 7.4 u, LDH 337 u, GOT 22 u, GPT 12 u,  $\gamma$ -GTP 13 mu/ml, ALP 8.1 u, LAP 120 u, ChE 11.5  $\mu\text{mol}$ , T Bil 0.3 mg/dl, TG 101 mg/dl, T Chol 205 mg/dl, BUN 21 mg/dl, S Cr 1.4 mg/dl, UA 5.6 mg/dl, Na 146 mEq/l, Cl 109 mEq/l, Ca 8.8 mg/dl, P 3.6 mg/dl, FBS 79 mg/dl, Amylase 90 u. 尿所見; 外観は赤褐色混濁, PH 5.0, 糖 (-), 蛋白 (+), 潜血 (卅),

ウロビリノーゲン (正), 沈渣では RBC (卅), WBC (卅), Epi. (+), Cocci (+), Rods (-). 尿細胞診では PC class IV を示した.

膀胱鏡所見: 後壁より出た表面が石灰化した巨大な腫瘍を認めた. 膀胱鏡のみでは結石か腫瘍表面の石灰化かの判別は困難であった. なお, 尿管口などの膀胱腔内の観察は不可能であった.

X線検査所見: KUB では骨盤腔内より淡い石灰化像を認める (Fig. 1A). なお, 両側腎の contour は不明瞭であった. DIP には上腹部に腎陰影を認めず, 骨盤腔内に造影剤の排泄がみられた. さらに, 左下部尿管の一部が認められたが, 右尿管は抽出されていない (Fig. 1B). 骨盤部 CT では表面に石灰化を伴う大きな腫瘍像がみられた (Fig. 2). さらに, Fig. 3 に示すように, 少し上のスライスを見ると,



Fig. 1. A: KUB, B: DIP

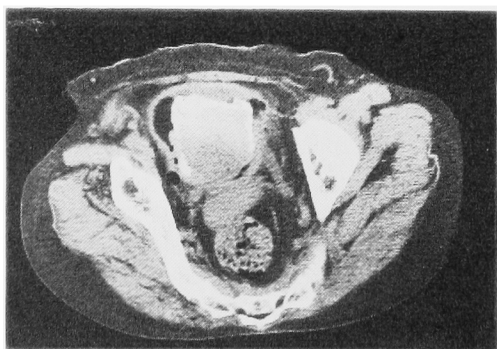


Fig. 2. Pelvic CT scan



Fig. 3. Pelvic CT scan

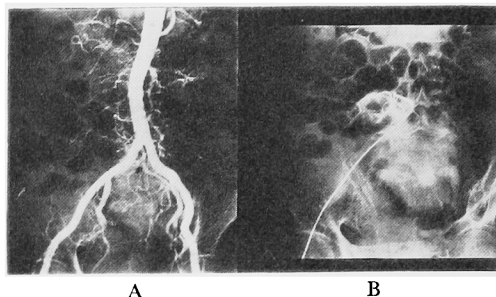


Fig. 4. PAG A: left renal artery derived from right common iliac artery, B: right renal artery

仙骨前面に左腎を認め, 左腎と融合した右腎がみられる. しかし, 右腎は萎縮状でほとんど腎の形態をしていない. 上腹部の CT スキャンでは, 後腹膜腔に両側腎はともに認められなかった.

PAG は大動脈分岐部の直下の右総腸骨動脈より下方に向かって, 1 本の左腎動脈を認める (Fig. 4A). さらに Fig. 4B に示すように, 左腎動脈の反対側より右方に右腎動脈と考えられる細い動脈が認められた. なお AAG では, 正常位置に腎動脈と考えられる動脈は存在しなかった.

入院後経過: 入院後に肉眼的血尿が持続するため, 1987年5月26日に PAG 施行時に起選択的膀胱動脈造影を実施し, 右膀胱動脈塞栓術を施行した. これにより肉眼的血尿は消失した.

ついで6月2日に, 腰麻下に膀胱鏡および生検を施行したが, 塞栓術の影響により確定的な組織診は行えなかった.

以上より, 膀胱腫瘍および融合性骨盤腎と診断し, 1987年6月18日に膀胱腫瘍に対して, 全麻下に手術を

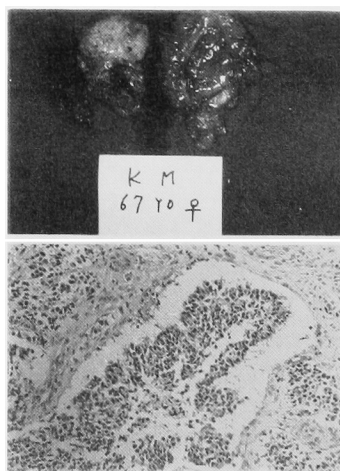


Fig. 5. Macroscopic (upper) and histological (lower) finding of the bladder tumor

施行した。まず、膀胱全摘術を行ったが、骨盤腎は手術の妨げとはならなかった。しかし腎が存在するため、後腹膜リンパ節の郭清はできなかった。

ついで、左尿管皮膚瘻術を実施した。左尿管は約 7 cm と短く、周囲組織と強固に癒着しており剥離が非常に困難であった。なお、右尿管は術中には同定しえなかった。

Fig. 5 は摘出標本の肉眼像および組織像である。腫瘍は周囲が石灰化しており、非常に脆く柔かった。摘出した膀胱においては、尿管口は左右とも正常位置に確認できた。腫瘍標本の病理組織学的診断は、TCC grade 2, stage pT2 であった。組織の写真は塞栓術による修飾を強く受けている。

術後経過は順調で、術後約 70 日目に退院した。

## 考 察

骨盤腎は比較的稀な奇型とされていたが、各種の診断技術の向上に伴い、その報告例は増加し、今日では決して稀なものとは言えなくなってきた。しかし、融合性骨盤腎あるいは塊状腎 (lump kidney)、菓子状腎 (cake kidney) と言われる奇型はその報告例も少ない。Virsedra ら<sup>1)</sup>は 1981 年に文献的に 20 例を認めたとしている。本邦では 1983 年に梶谷ら<sup>2)</sup>が 5 例を報告し、それ以外の報告例は少ない<sup>3,4)</sup>。しかし、無症状のまま経過する例もかなりあるとみられ、Virsedra ら<sup>1)</sup>は全異所性腎の 10% を占めるとしているが、正確な発生頻度はつかめていない。

診断基準としては、Gleen<sup>5)</sup> のものがよく引用されている。すなわち、腎実質全体が骨盤腔内で一塊となっており、両側の尿管がはっきりと確認でき、さらに膀胱と尿管の位置関係は正常ということである。本例は手術時には右尿管の確認ができなかったが、摘出標本で正常位置に尿管口を認め、CT でも左腎と融合した萎縮状の右腎が描出されたことにより、lump kidney と診断した。

Ectopic kidney の分類としては、Harrison ら<sup>6)</sup>によるものが一般によく用いられている。すなわち、1) simple ectopia, a: unilateral, b: bilateral, 2) crossed ectopia with or without fusion, 3) movable kidney と分けている。この分類によれば、この症例は crossed ectopia with fusion ということになる。

なお、crossed renal ectopia の分類は Abeshouse ら<sup>7)</sup>により 4 群に分類されている。

- I) Crossed ectopia with fusion
- II) Crossed ectopia without fusion
- III) Solitary crossed renal ectopia

## IV) Bilateral crossed renal ectopia

さらに、McDonald ら<sup>8)</sup>は I 群を以下の 6 群に分類している。

- A) Unilateral fused kidney with ectopic kidney inferior
- B) Sigmoid or S-shaped kidney
- C) Lump kidney
- D) L-shaped kidney
- E) Disc kidney
- F) Unilateral fused kidney with ectopic kidney superior

上記の分類によればこの症例は I-C となる。

発生原因はいまだに明確な結論は得られていないが、5 mm 胚芽期に Wolff 管から発生する尿管芽の上昇機転が何らか機序で障害されるためと考えられている<sup>9)</sup>。その原因として以下のようなものが挙げられている。1) 血管による障害、2) 尿管芽そのものの欠陥、3) 骨盤の奇型、4) 後腎の発生異常、5) 遺伝的欠損、6) 妊娠初期における母親の病気などである。尿管芽と起原を同じくする骨の奇型と骨盤腎の合併が多いという報告<sup>10,11)</sup>もあり、この発生原因を支持する一因となる。また、組織学的に未熟な糸球体、cystic change および大きく延長した尿細管を認めたという報告もあり<sup>5)</sup>、機械的な障害だけでなく、腎の発生そのものの異常をも伴う可能性を示唆する。

さて、融合性骨盤腎も、一般的な骨盤腎としての特徴もそなえているはずである。骨盤腎の特徴としては、1) 短い尿管、2) 変形した腎盂、3) 血管支配の異常が指摘されている<sup>2)</sup>。

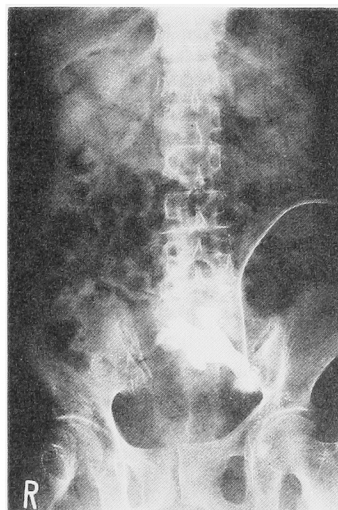


Fig. 6. Left retrograde pyelography through the ureterocutaneostomy

本症例においても Fig. 4 に示すように、腎動脈は大動脈分岐部直下の右総腸骨動脈より分岐している。また、Fig. 6 は術後の尿管皮膚瘻より左逆行性腎盂造影像であるが、短い尿管と腎盂の変形が認められる。

骨盤腎の合併症としては水腎症、VUR および結石が指摘されており、さらに女性においては、しばしば難産の原因になるといわれている<sup>9)</sup>。本症例は3回の出産を経験しており、第2子は死産であった。骨盤腎がその原因となった可能性も否定できないが、さして出産には影響しないという報告<sup>13)</sup>もあり、はっきりとした結論は出せない。

治療法としては、異所性腎そのものは無症状のまま経過する例も多く、そのような場合保存的治療がよいとされている<sup>14, 15)</sup>。

Kelalis ら<sup>16)</sup>によれば、剖検例でみれば大人より子供に発生頻度が高いとしている。すなわち、重篤な奇型を有する場合は幼少期に死亡してしまう可能性もあり、成人で症状をあらわすのは合併症によることが多いとも考えられる。それゆえ、それぞれの合併症に対する治療を試みることになる。しかし症例によっては、もし他側の腎機能が良好であれば、腎摘除術を行ってもかなわない<sup>13)</sup>。ただし、血管支配が多くなりがちなので、できればさわらない方がよいという意見もあり<sup>9)</sup>、注意を要する。いずれにせよ、CT を初めとする画像診断の技術が進歩した今日、骨盤腎に気づかないまま腎摘をしてしまうような事態に陥ること<sup>17)</sup>はまず考えられない。McCarthy ら<sup>18)</sup>は、crossed renal ectopia における超音波像に言及して、腎が存在しないのかかわらず、肝屈曲部や脾屈曲部および腸などが腎のように描出されることがあったり、異所性腎が同定できないと agensis と間違ふこともあるとしており、油断は禁物である。

最後に、本例のごとく膀胱を摘出する必要のある症例の場合であるが、膀胱全摘自体は腎の血管支配にさえ注意を払っておけば、さして困難ではない。やはり問題となるのは尿路変更術であろう。cake kidney の患者に膀胱全摘を施行した例は、私たちが調べた限りでは Vaughn ら<sup>19)</sup>の1例のみである。彼らによれば、尿管の長さが5 cm 以下ということもあり、最も簡単な尿路変更法は尿管S状結腸吻合術であるとしている。しかし、彼らの症例では左尿管が拡張しており、この方法は採用しえなかった。結局、約30 cm の回腸を利用して、それをS状結腸間膜の間隙を通して、S状結腸の後面で尿管と吻合している。これにより緊張のかからない回腸導管を造設でき、満足のいく結果がえられた。

さて本症例においては、Vaughn らの症例に加えて、右腎は萎縮性無機能腎であり、さらに複雑な条件が加味される。本例でも、左尿管は短かく、しかも周囲組織が硬い線維状で尿管を取り巻いており、きわめて剝離が困難な状態であった。尿管S状結腸吻合術も考慮したが、1) 左腎しか機能していないこと、2) 逆行性尿路感染による腎機能低下、3) 術後縫合不全発生の際、再度の尿路変更術は不可能と思われることから、左尿管皮膚瘻術を選択し施行した。

術後は通常の尿管皮膚瘻と何ら変わることなく管理することが可能であった。

## 結 語

67歳、女子にみられた、膀胱全摘を要する膀胱腫瘍を合併した塊状腎の1例を報告し、若干の文献的考察を加えた。

稿を終えるにあたり、御校閲を賜った大阪市立大学、前川正信教授に深謝するとともに、御熱心に協力を頂いた当院放射線科の堀信一郎長に感謝いたします。

本論文の要旨は第120回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

## 文 献

- 1) Virseda JA, Benito DS, Segarra J and Jaime F: Anomalia reanl infrecuente. *Actas Urol Esp* 5: 367-370, 1981
- 2) 梶谷雅春, 西田 勉: 塊状腎 (Lump kidney) の1例. *大分県立病院医学雑誌* 11: 195-198, 1983
- 3) 征矢野明子, 大谷 勉, 今井 正, 細江昭比古, 平田清二, 山本崇晴, 西村 豊: Fanconi anemia の1例—まれな腎奇形である pelvic kidney with fusion を伴った例—. *小児臨* 38: 1079-1084, 1985
- 4) 津田竜三, 亀田健一, 北川 勲: Fused pelvic (cake) kidney の1例. *日泌尿会誌* 57: 196-202, 1966
- 5) Glenn JF: Fused pelvic kidney. *J Urol* 80: 7-9, 1958
- 6) Harrison JH: *Campbell's Urology*, 4th ed p. 1317, WB Saunders Co, Philadelphia, 1979,
- 7) Abeshouse BS and Bhisitkul I: Crossed renal ectopia with and without fusion. *Urol Int* 9: 63-91, 1959
- 8) McDonald JH and McClellan DS: Crossed renal ectopia. *Am J Surg* 93: 995-1002, 1957
- 9) Ward JN, Nathanson B and Draper JW: The pelvic kidney. *J Urol* 91: 36-39, 1965
- 10) 滝内秀和, 桜井 勲, 辻本幸夫, 菅尾英木, 中村正広: VUR, 神経因性膀胱に合併した単腎性骨盤腎の1例. *泌尿紀要* 33: 75-78, 1987
- 11) 後藤敏明, 信野祐一郎, 谷口光太郎, 野々村克也, 高松恒夫, 丸 彰夫, 小柳知彦: 背椎奇形と尿路

- ・性器奇形一特に交叉性腎変位と非対称性融合腎について一. 日泌尿会誌 **76**: 974-984, 1985
- 12) 赤沢信幸, 池 紀征, 松村陽右, 大森弘之: 多くの合併奇形を有する両側骨盤腎の1例. 西日泌尿 **41**: 529-539, 1979
- 13) Thompson GJ and Pace JM: Ectopic kidney. Surg Gynecol Obstet **64**: 935-943, 1937
- 14) 小口文郎, 高須秀彦, 黒淵純治: 泌尿性器奇形を伴う骨盤腎の1例. 臨床皮泌 **19**: 395-402, 1965
- 15) 瀬口利信, 西本直光, 三好 進, 岩尾典夫, 水谷修太郎: 腎尿路奇形の臨床例(1) 骨盤腎(片側単純骨盤腎偏位)の1例. 大労医誌 **4**: 178-183, 1980
- 16) Kelalis PP, Malek RS and Segura JW: Observations on renal ectopia and fusion in children. J Urol **110**: 588-592, 1973
- 17) 小林玄春: 内性器の奇形を伴った骨盤腎の1例. 産婦の世界 **13**: 633-636, 1961
- 18) McCarthy S and Rosenfield AT: Ultrasonography in crossed renal ectopia. J Ultrasound Med **3**: 107-112, 1984
- 19) Vaughn W, Hickey D, Hughes W and Soloway M: Radical cystectomy in presence of fused "cake" kidney. Urology **29**: 552-554, 1987  
(1988年6月8日受付)