

## 膀胱尿管逆流症の家族内発症例

佐世保共済病院泌尿器科 (部長 : 山田 潤)

山崎 安人, 渡辺 淳一, 野口 満, 山田 潤

## VESICoureTERAL REFLUX IN A FAMILY

Yasuto YAMASAKI, Jun-ichi WATANABE, Mitsuru NOGUCHI and Jun YAMADA

From the Department of Urology, Sasebo Kyo-sai Hospital

We treated 3 cases of primary familial vesicoureteral reflux (VUR). Case 1: A 6-year-old boy had a grade III VUR in the left. Case 2: A 9-year-old boy, who was the elder brother of case 1, had grade III VUR in the right and grade V VUR in the left. Case 3: An 11-year-old girl, who was the elder sister of case 1 and case 2, had bilateral grade V VUR. VUR disappeared after anti-reflux operations in all cases.

(Acta Urol. Jpn. 47 : 793-795, 2001)

**Key words :** Vesicoureteral reflux, Family occurrence

## 緒 言

膀胱尿管逆流現象 vesicoureteral reflux (以下 VUR) は泌尿器科領域においてよく見られる疾患の 1 つであり, 発生頻度は原発性の場合, 小児人口の 1 % 以下であるといわれている<sup>1)</sup>

今回われわれは 4 兄弟のうち 3 兄弟 (長女, 二男, 三男) に VUR を認めた 1 家系を経験したので若干の文献的考察を加え報告する. なお, VUR grade の分類は国際分類 (International Reflux Study Committee) にて行った.

## 症 例

患者 1 : 6 歳, 男子 (三男).

現病歴 : 生後 4 カ月より不明熱を繰り返し, 1 歳時に近医小児科で, 超音波にて左水腎症を指摘された. 1993 年 2 月, 左腎精査目的に当科紹介された.

理学所見 : 特に異常なし

検査所見 : 血液生化学検査は特に異常なし. 尿検査で白血球 10/hpf と膿尿を認めた. 画像検査では IVP にて左腎に軽度腎杯腎盂の拡張があり, 排尿時膀胱尿道造影 voiding cystourethrogram (以下 VCUG) では左に grade III の VUR を認めたが膀胱や尿道に異常なく, 排尿時の異常, 残尿もなかった. 膀胱鏡では両側尿管口の形態異常を認めなかった.

治療経過 : 同年 3 月, Cohen 法による逆流防止術を左尿管に行った. 術後の VCUG では VUR, 左腎杯腎盂の拡張は消失し, 膿尿は改善した.

患者 2 : 9 歳, 男子, 患者 1 の兄 (二男).

現病歴 : 尿失禁の既往があったため VUR の精査を勧めた.

理学所見 : 特に異常なし

検査所見 : 血液生化学検査では特に異常なく, 尿検査で白血球 10/hpf と膿尿を認めた. 画像検査では IVP の左の中等度腎杯腎盂の拡張と, 造影剤の排泄遅延を認めた. VCUG で左に grade V の VUR, 右に grade III の VUR を認めたが, 膀胱や尿道に異常なく, 排尿時の異常, 残尿もなかった. 膀胱鏡では両側尿管口の形態異常を認めなかった. 尿失禁に関しては入院中認められなかったため, 膀胱機能の精査は行わなかった.

治療経過 : 同年 10 月, Cohen 法による逆流防止術を右尿管に行い, 右に比べ拡張が大きかったことから Kalicinsky 法による folding と Politano-Leadbetter 法による逆流防止術を左尿管に行った. 術後の VCUG では両側 VUR は消失し, 尿失禁も認めなかった.

患者 3 : 11 歳, 女子. 患者 1 と 2 の姉 (長女).

現病歴 : 8 歳の頃, 腎盂腎炎疑いの既往があったため, 患者 1 の後, 患者 2 と共に VUR の精査を勧めた.

現学所見 : 特に異常なし

検査所見 : 血液生化学検査では異常所見なく, 尿検査で白血球 20/hpf と膿尿を認めた. 画像検査では IVP にて左腎に中等度腎杯腎盂の拡張, 右腎に軽度腎盂の拡張を認め, VCUG にて両側 grade V の VUR を認めたが, 膀胱や尿道に異常なく, 排尿時の異常, 残尿もなかった (Fig. 1). 膀胱鏡では両側尿管口の形態異常を認めなかった. 1993 年 10 月, Politano-Leadbetter 法による逆流防止術を両側尿管に行い, 術後, 膿尿も消失し, VCUG では VUR は消失した.

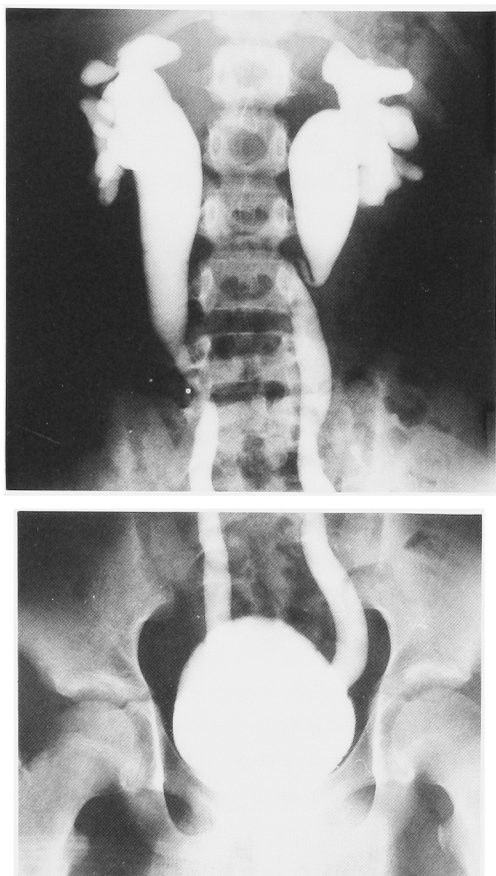


Fig. 1. Voiding cystourethrogram showed bilateral grade V VUR (Case 3).

Table 1. HLA typing

|    | A Locus | B Locus | C Locus |
|----|---------|---------|---------|
| 二男 | A2      | B48     | (-)     |
|    | A24     | B52     | (-)     |
| 三男 | A11     | B13     | CW3     |
|    | A26     | B62     | CW7     |
| 母親 | A2      | B48     | (-)     |
|    | A26     | B62     | CW7     |

長男、父親、母親、祖父母にも VUR の精査を勧めたが、拒否されたため行っていない。二男、三男、母親には遺伝的精査目的の HLA 検査の同意が得られ、HLA 検査を行ったが、3 人の間には報告されているような HLA の組み合わせはみられなかった (Table 1)。

## 考 察

VUR は Stephens ら<sup>2)</sup>が1955年に一卵性双生児における VUR 例を発表して以来文献的には、患児の約16~45%に兄弟例が認められている<sup>3,4)</sup> また、親が VUR を持つ場合、その子供の42~67%に発症を認めるなど、家族性発症が注目されている<sup>5,6)</sup> VUR の遺伝形式は文献的には、Senger ら<sup>7)</sup>などの報告により、HLA 抗原では、HLA-B12, B15, AW32,

A3, A9, HLA ハロタイプでは A9-B12 と A2-B8 の組み合わせが関連しているといわれている。一方で Burger ら<sup>8)</sup>は、多因子遺伝説を支持し、Noe ら<sup>6)</sup>は多因子遺伝、または種々の程度の浸透率をもった常染色体遺伝異常が関係すると報告している。

今家系においては、同意が得られた二男、三男、母親の HLA について検査を行いえたが、報告されているような HLA の組み合わせ結果は得られなかった。

VUR は家族性発症がみられることがあり、患者の家族にもスクリーニング検査が必要と考える。寺島ら<sup>9)</sup>は①家族全員に対する尿検査、超音波検査と詳細な問診。②思春期前の小児には全員 VCUG を行う。③思春期後の家族に対しては①において VUR を疑わせる所見や既往のある人についてのみ VCUG を行うことと提案している。

家族全員から検査の同意を得ることは困難かもしれないが、VUR による逆流性腎症で腎不全に陥る可能性があることを十分理解してもらい、VUR 家族性発症に対して積極的検査を行っていく必要があると考える。

## 結 語

今回われわれは4兄弟のうちの3兄弟 (長女、二男、三男) に VUR を家族性に認めた1家系を報告した。

## 文 献

- 1) Kramer SA: Vesicoureteral reflux. Clinical Pediatric Urology (3<sup>rd</sup> ed), WB Saunders, Philadelphia, pp. 441-499, 1992
- 2) Stephens FD, Joske RA and Simmons RT: Megaureter with vesico-ureteric reflux in twins. Aust N Z J Surg **24**: 192-194, 1955
- 3) Bredin HC, Winchester P, McGovern JH, et al.: Family study of vesicoureteral reflux. J Urol **113**: 623-625, 1975
- 4) Van den Abbeele AD, Treves ST, Lebowitz RL, et al.: Vesicoureteral reflux in asymptomatic siblings of patients with known reflux: radionuclide cystography. Pediatrics **79**: 147-153, 1987
- 5) Aggarwal VK and Jones KV: Vesicoureteric reflux: screening of first degree relatives. Arch Dis Child **64**: 1538-1541, 1989
- 6) Noe HN, Wyatt RJ, Peeden JN, et al.: The transmission of vesicoureteral reflux from parent to child. J Urol **148**: 1869-1871, 1992
- 7) Senger DPS, Rashid A and Wolfish NM: Familial urinary tract anomalies; association with the major histocompatibility complex in man. J Urol **121**: 194-197, 1979
- 8) Burger RH: A theory on the nature of transmission

- of congenital vesicoureteral reflux. J Urol **108** : 249-254, 1972
- 9) 寺島和光, 佐野克行, 関口由紀 : 膀胱尿管逆流症と家族内発症. 小児外科 **26**(3) : 382-385, 1994  
(Received on April 2, 2001)  
(Accepted on June 26, 2001)