

異時性に両側ユリノーマを形成した 特発性後腹膜線維化症の1例

木島 敏樹, 奥野 哲男, 酒井 康之
岩井 安芸, 和久井 守
取手協同病院泌尿器科

A CASE OF IDIOPATHIC RETROPERITONEAL FIBROSIS ACCOMPANIED BY ASYNCHRONOUS BILATERAL URINOMA

Toshiki KIJIMA, Tetsuo OKUNO, Yasuyuki SAKAI,
Aki IWAI and Mamoru WAKUI
The Department of Urology, Toride Kyodo General Hospital

The patient was a 68-year-old female with the complaint of left flank pain. On examination, hydronephrosis of the left kidney and the urinoma of left retroperitoneal space were disclosed by abdominal computed tomographic (CT) scan. The urinoma disappeared spontaneously, but 4 months later right hydronephrosis and the urinoma of ipsilateral retroperitoneum emerged. Enhanced CT scan revealed aneurysm of bilateral common iliac arteries and perianeurysmal fibrotic mass. After steroid therapy under the diagnosis of idiopathic retroperitoneal fibrosis (IRPF), the fibrotic mass reduced in size and the urinoma disappeared. We should be aware that urinomas, which are thought to be caused by sudden obstruction of the upper urinary tract, could be brought about by IRPF.

(Hinyokika Kyo 52 : 211-214, 2006)

Key words : Idiopathic retroperitoneal fibrosis, Urinoma

緒 言

特発性後腹膜線維化症は Ormond¹⁾により概念が確立された, 後腹膜腔を中心とした原因不明の結合組織の進行性増殖をきたす疾患である。線維性組織に尿管が巻き込まれ通過障害を来とし, 患側の水腎症にて発症することが多いが, ユリノーマを形成することは稀である²⁾ 異時性に両側のユリノーマを形成し, ステロイド治療のみで軽快した症例を経験したので報告する。

症 例

患者: 68歳, 女性

主訴: 左腰背部痛

既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2003年3月, 左腰背部痛にて前医を受診した。WBC $7,200/\text{mm}^3$, CRP 1.20 mg/dl と軽度の炎症反応を認め, 単純CTにて左水腎症と左後腹膜腔の液体貯留が指摘された (Fig. 1)。水腎症, 腎盂外溢流に伴うユリノーマの診断にて保存的に経過観察したところ, 水腎症は自然軽快し, 5月にはユリノーマが消失した。しかし7月, 右水腎症と右後腹膜腔の新たな液体貯留が出現し, 7月28日に精査目的にて当院に紹介され, 8月6日に入院となった。

入院時現症: 断続的な右側腹部痛を認めるほかは異常所見なし。

入院時検査所見: WBC $6,000/\text{mm}^3$, RBC $383 \times 10^4/\text{mm}^3$, Plt $24.9 \times 10^4/\text{mm}^3$, CRP 1.63 mg/dl と軽度の炎症反応を認めた。総腎機能は正常で, 腫瘍マーカー・抗核抗体はともに陰性であった。尿検査に異常所見を認めず, 尿細胞診は class I であった。

画像検査所見: 造影CTにて, 両側水腎症と右腎下部に長径8cmのユリノーマを認めた。また両側総腸骨動脈に径2cmの動脈瘤を認め, その周囲に肥厚した軟部陰影を認めた (Fig. 2)。この軟部陰影は前医初診時のCTでも存在していた。悪性腫瘍の検索のために胸部CT, 消化器内視鏡検査を施行したが, 異常は認めなかった。以上の所見より, 特発性後腹膜線維化症と診断した。

入院後経過: 8月7日よりプレドニゾロン 30 mg/day の内服治療を開始した。1週間後には右側腹部痛は消失し, 2週間後に 20 mg/day に減量した。CTにて改善傾向を確認しつつ, 4週間ごとに 10 mg/day , 5 mg/day と漸減し, ユリノーマはほぼ消失した (Fig. 3)。その後も投与量を漸減し治療中止を試みたが, 2004年3月に水腎の再増悪傾向が認められたため, 10 mg/day から治療を再開し, 2005年5月現在, 2.5 mg/day を維持量として治療を継続中である。

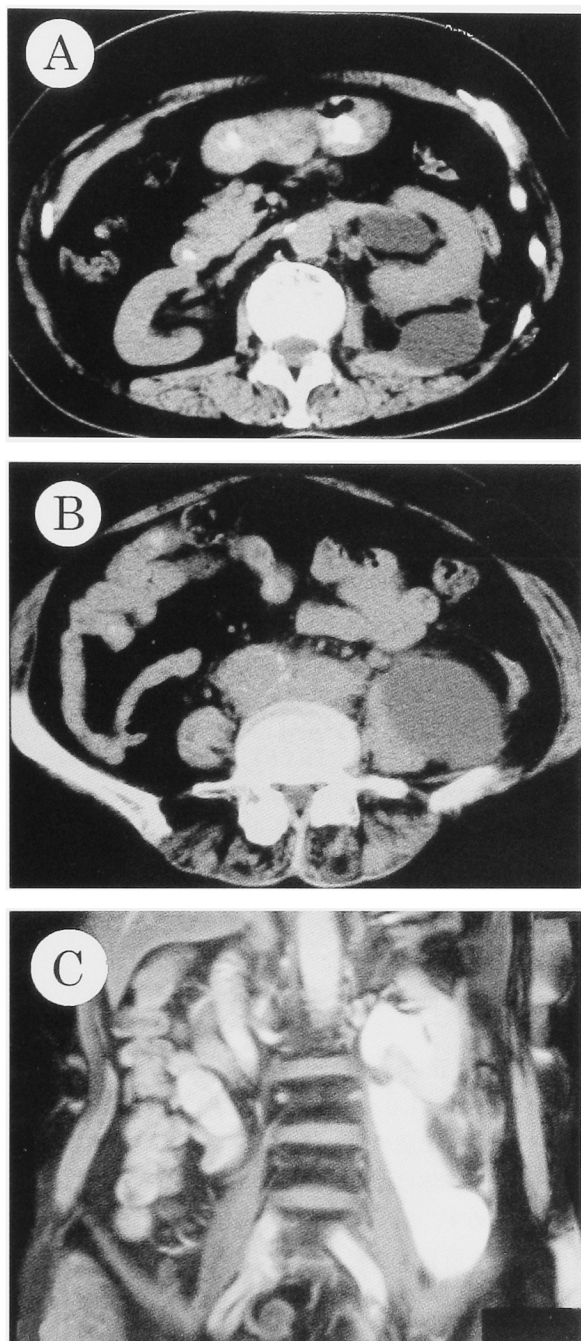


Fig. 1. CT scan revealed left hydronephrosis (A) and the urinoma of left retroperitoneal space (B). MRI showed coronal image of the urinoma (C).

考 察

後腹膜線維化症は、その70%が特発性であり、残りの30%が悪性腫瘍や薬品、感染、腹腔内への出血や尿の漏出に続発した二次性のものであるといわれている³⁾。特発性の原因としては、動脈瘤壁や粥状硬化した動脈壁の微小穿孔から後腹膜腔へ漏出した血漿成分⁴⁾や、粥状硬化の進んだ大動脈壁内の plaque⁵⁾ に対する自己免疫反応であるという説が有力である。

本症に特徴的な画像所見は、総腸骨動脈周囲にびま

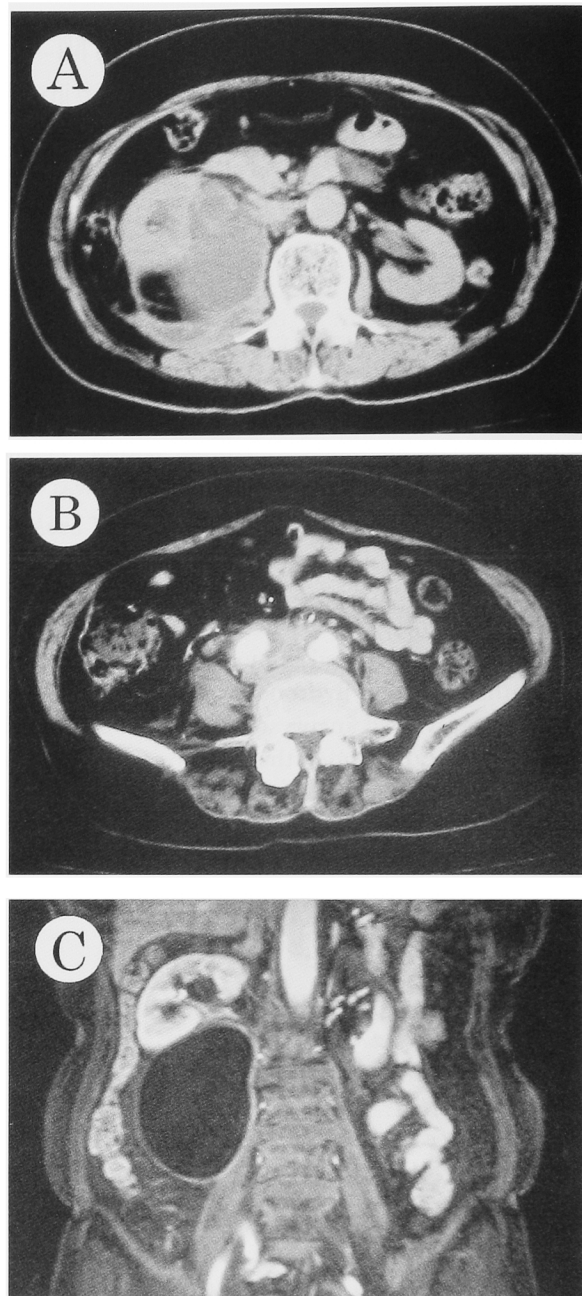


Fig. 2. CT scan revealed the urinoma of right retroperitoneal space (A) and periaurysmal fibrotic mass around bilateral common iliac arteries (B). MRI showed coronal image of the urinoma (C).

んに肥厚した線維組織の増生と、それに伴う両側の水腎・水尿管である。しかしユリノマを形成することは稀であり、本邦においてはこれまでに3例⁶⁻⁸⁾が報告されているのみである。

ユリノマは急激かつ持続的な腎盂内圧上昇により腎杯円蓋部より尿が溢流することにより形成され、その原因としては外傷、尿路結石、尿管腫瘍、手術や尿管ステント挿入などの医療行為などが挙げられる²⁾。後腹膜線維化症は慢性的に進行し急激な内圧上昇を来たしにくいため、ユリノマの原因となることが少な

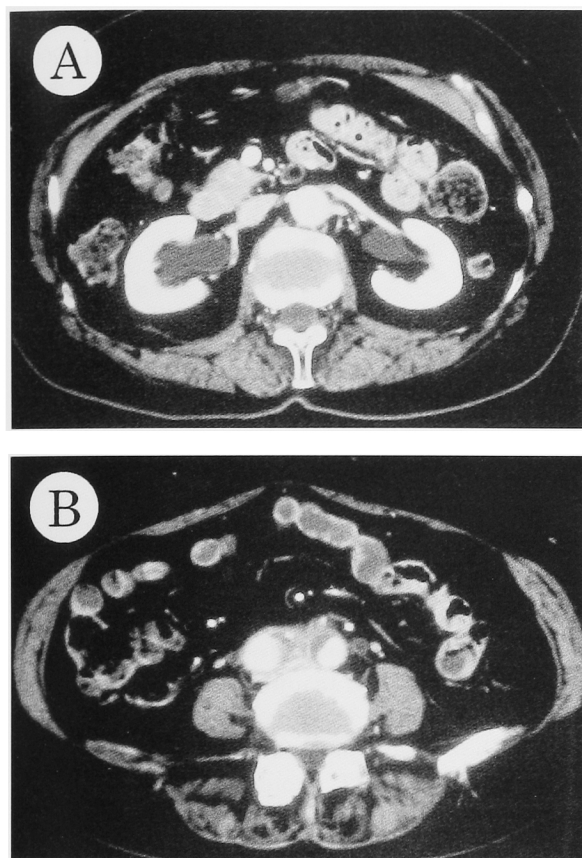


Fig. 3. After steroid therapy, bilateral hydronephrosis slightly remained (A), however the urinoma and the perianeurysmal had completely disappeared (B).

いと考えられている²⁾

自験例は両側性のユリノーマ形成だけでなく、経過中に無治療にて自然軽快した時期があるという点でも稀な症例である。

後腹膜線維化症の自然軽快に関しては、これまでに、無治療にて動脈周囲の腫瘍の縮小、水腎症の消失が得られた症例⁹⁾や、腎瘻造設¹⁰⁾尿管ステント留置¹¹⁾を施行したが、その後、無治療で軽快した症例などが報告されている。動脈壁からの血漿成分漏出が増加したか、何らかの誘因で自己免疫機序が活性化されたことにより、一過性の血管周囲炎を来したが、その後炎症が自然に消退したためではないかと考察されている^{9, 10)}

自験例は、総腸骨動脈の動脈瘤を原因とする血管周囲炎により慢性的な尿管への圧迫が存在し、一過性の炎症増悪による急激な内圧上昇が加わったため、ユリノーマ形成やその後の一時的な自然軽快を来したと考えられる。後腹膜線維化症の中には自験例のようにユリノーマを形成するほどの急速進行型も存在すると認識する必要があると考えられる。

本疾患の治療はステロイドによる保存的治療と手術療法に大別されるが、Higgins ら¹²⁾は後腹膜線維化症

にはほぼ間違いないと診断された場合、まずステロイド療法を2～3週間試みて、治療効果がなければ開腹手術を考慮すればいいのではないかと述べている。また、これまでの自然軽快報告例では無治療経過観察にて再発を認めなかったとされているが、自験例では初診時増悪傾向であったため、ステロイド治療を施行した。ユリノーマ形成性であってもステロイド治療のみで消失しうることはすでに報告されており⁸⁾、自験例でもドレナージは不要であった。しかし、治療中止により再び血管周囲の炎症が増悪する可能性があること、悪性腫瘍の可能性が否定しきれないことより、今後も厳重な経過観察が必要であると考えられる。

結 語

異時性に両側性ユリノーマを形成した後腹膜線維化症の1例を経験した。

後腹膜線維化症にはユリノーマを生じうる急速進行型の症例も存在すると考えられた。

本論文の要旨は第59回日本泌尿器科学会茨城地方会にて発表した。

文 献

- 1) Ormond JK: Bilateral ureteral obstruction due to envelopment and compression by an inflammatory retroperitoneal process. *J Urol* **59**: 1072-1079, 1948
- 2) Friedenberg RM, Moorehouse H and Gade M: Urinomas secondary to pyelosinus backflow. *Urol Radiol* **5**: 23-29, 1983
- 3) Amis Jr ES: Retroperitoneal fibrosis. *AJR Am J Roentgenol* **157**: 321-329, 1991
- 4) Serra RM, Engle JE, Jones RE, et al.: Perianeurysmal retroperitoneal fibrosis: an unusual cause of renal failure. *Am J Med* **68**: 149-153, 1980
- 5) Mitchinson MJ: Retroperitoneal fibrosis revisited. *Arch Pathol Lab Med* **110**: 784-786, 1986
- 6) 関 聡, 梅田俊一, 松下高暁: Urinoma の1例. *日泌尿会誌* **82**: 1690, 1991
- 7) 森田照男, 北村慎治, 安川 修: 片側性かつ下部尿管に限局化したため尿管腫瘍が強く疑われた後腹膜線維化症の1例. *泌尿紀要* **38**: 1147-1150, 1992
- 8) 酒井善之: ステロイド療法後に腎被膜下ユリノーマが消失した特発性後腹膜線維化症の1例. *泌尿紀要* **45**: 249-251, 1999
- 9) Kume H and Kitamura T: Spontaneous regression of bilateral hydronephrosis due to retroperitoneal fibrosis. *Scand J Urol Nephrol* **34**: 255-256, 2001
- 10) Robbe IJ and Dixon AK: Spontaneous resolution of ureteric obstruction in perianeurysmal retroperitoneal fibrosis. *BJR* **57**: 92-95, 1984
- 11) Pierre S, Cordy PE and Razvi H: Retroperitoneal

- fibrosis: a case report of spontaneous resolution.
Clinical Nephrol **57**: 314-319, 2002
- 12) Higgins PM, Bennett-Jones DN, Naish PF, et al.:
Non-operative management of retroperitoneal
fibrosis. Br J Surg **75**: 573-577, 1988
(Received on May 24, 2005)
(Accepted on September 2, 2005)