●症例報告●

反復性尿路感染症と遺尿症を合併し、左異所性尿管瘤、
尿道狭窄および左低形成腎が認められた1女児例植村 篤実^{*1}・平松美佐子^{*1}・秋田 泰之^{*2}

(受付日：平成20年7月22日 採用日：平成20年8月27日)

要 旨

症例は9歳女児。腎盂腎炎に遺尿症を伴っており、精査の結果、左尿管瘤と左低形成腎が判明した。膀胱尿管逆流症は認められなかった。残尿が認められ、膀胱内圧に比して尿意が微弱であった。

不安定膀胱として distigmine bromide と prazosin hydrochloride を使用したところ昼間尿失禁は消失した。Break through infection を起こしたため cefaclor の予防内服を追加した。その後、尿路感染症の再発はなかったが夜尿が持続した。膀胱鏡検査により尿道狭窄が判明し、尿道切開術を施行した。また、左尿管瘤は膀胱頸部に異所性に開口していた。以後、薬剤投与を中止したが尿路感染症と夜尿は消失した。

治療抵抗性の遺尿症に対して、泌尿生殖器系異常が存在する場合には、異常の程度の悪化や他の異常の合併を疑って膀胱鏡などによる原因検索が必要な場合があると考えられる。

序 言

尿路感染症と遺尿症（夜尿症および昼間尿失禁症）は小児によくみられる疾患であり、いずれも腎尿路系の異

^{*1}国立病院機構西別府病院小児科
(〒874-0840 別府市鶴見4548)

^{*2}福岡市立こども病院・感染症センター、現大分大学泌尿器科

An ectopic ureterocele, an urethrostenosis and a hypoplastic kidney in a girl with urinary tract infection and enuresis

Atsumi Uemura^{*1}, Misako Hiramatsu^{*1}, Yasuyuki Akita^{*2}

^{*1}Department of Pediatrics, Nishibeppu National Hospital

^{*2}Department of Urology, Fukuoka Children's Hospital and Medical Center for Infectious Diseases
Department of Urology, Faculty of Medicine, Oita University

常が原因となることがあるため、基礎疾患の鑑別と評価が重要である^{1)~5)}。腎尿路系の解剖学的異常を有する児には複数の異常が合併することがよくみられ、注意深い評価が必要である。今回、反復性尿路感染症と遺尿症を合併した児に、左異所性尿管瘤、尿道狭窄、左低形成腎が認められたので報告する。

症 例

症例：9歳，女児。

主訴：発熱，頻尿，残尿感，腹痛。遺尿症（夜尿および昼間尿失禁）。

家族歴：遺尿症，腎尿路系疾患の家族歴はない。

既往歴：生後8か月時に腎盂腎炎により発熱。他院にて精査の結果左尿管瘤と同側の膀胱尿管逆流症が判明し，尿管瘤切開術および尿管膀胱流入部形成術をうけた。術後，膀胱尿管逆流は消失したことを確認された。しかしながら，その後も年に1，2回尿路感染症を反復していた。年に1回，他院小児科にて術後の経過観察をされていた。

現病歴：2005年7月17日朝から頻尿と残尿感が出現し，10時頃から39℃の発熱があった。夜になり腹痛も認められたため，21時に夜間救急外来を受診した。尿中白血球の増多を認めたため尿路感染症の診断にて当院入院となった。

入院時現症：体温：40.2℃。血圧：114/64mmHg。脈拍：120/分。咽頭：軽度発赤。心・肺聴診所見：異常なし。腹部：圧痛なし。外陰部：発赤・びらん・膿を認めない。

Key words：尿路感染症

遺尿症

尿管瘤

尿道狭窄

低形成腎

表 1 入院時検査所見

血算		血液生化学		検尿	
WBC	11,200/ $\mu\ell$	AST	31 IU/ ℓ	比重	<1.005
Neut	78.1%	ALT	24 IU/ ℓ	pH	6.5
Ly	12.0%	LDH	242 IU/ ℓ	尿蛋白	—
Mo	8.3%	γ -GTP	14 IU/ ℓ	尿潜血	—
Eo	1.2%	Cre	0.41mg/d ℓ	白血球	20~29/HPF
Ba	0.4%	Na	140mEq/L	赤血球	<1/HPF
RBC	458 $\times 10^4$ / $\mu\ell$	K	4.2mEq/L	扁平上皮	<1/HPF
Hb	13.8g/d ℓ	Cl	104mEq/L	尿細管上皮	1~4/HPF
Ht	39.1%	CRP	3.82mg/d ℓ		
Plts	34.3 $\times 10^4$ / $\mu\ell$		→10.05mg/d ℓ

図 1 経過

FMOX : flomoxef, CAM : clarithromycin, RKM : rokitamycin, LVFX : levofloxacin

図 2 超音波検査所見 (左尿管瘤)

入院時検査所見 (表 1) :尿中白血球の増多 (20~29/HPF), CRP 上昇 (入院時3.82mg/d ℓ , 翌日10.05mg/d ℓ), 白血球増多 (11,200/ $\mu\ell$) を認めた。尿培養は施行できなかった。

入院後検査所見 :経過を図 1 に示す。Flomoxef 点滴にて症状は消失したが、週に5~7晩の夜尿と昼間遺尿も伴っており、腎盂腎炎治癒後に精査をおこなった。超音波検査で膀胱左側に径8~15mmの間で大きさが上下する嚢胞状の所見を認め、左尿管瘤と診断した (図 2)。また、左腎が5.0mm $\times$ 3.0mmであったのに対して、右腎は10.5mm $\times$ 7.6mmであった。左腎は軽度の腎盂拡張を伴っていたが、皮質と髄質の比は正常範囲内であった。左低形成腎および右腎の代償性肥大と診断した。尿管瘤および腎の大きさの左右差は腹部 CT でも認められた (図 3 a, b)。排尿時膀胱造影 (VCG) では膀胱尿管逆流や尿道リング、明らかな尿道狭窄は認められなかった。経静脈性腎盂尿管造影 (IP) では、膀胱内に尿管瘤の陰影を認めた。重複腎盂尿管および巨大膀胱は認めなかった。膀胱内圧測定では不安定膀胱であり、膀胱内圧に比して尿意が微弱であった。また、残尿が認め

られた。

クレアチニンクリアランスは126m ℓ /min/1.73m³であった。Fishberg 試験では、尿浸透圧は最高962mOsm/kgであった。

退院後経過 :不安定膀胱に対して、distigmine bromide と prazosin hydrochloride 内服を開始して退院とし、抗生剤は使用せず経過を観察した。昼間遺尿は消失したが、夜尿は持続していた。7か月後、発熱時に尿中白血球増多および CRP 上昇 (>10mg/d ℓ) を認めた。Break through infection と考え、cefaclor 10mg/kg の就寝前1回投与を開始した。その後は尿路感染症は認めなかった。

治療開始後1年経過しても週1~2晩の夜尿が持続するため10歳時 (2006年8月) に膀胱鏡検査を施行したところ、尿道狭窄が判明した。尿道狭窄に対して尿道切開術を施行した。また、左尿管瘤は膀胱頸部に異所性に開口していた。VCG では膀胱尿管逆流症は認められなかった。以後、薬剤投与を中止したが夜尿は消失した。さらに1年半が経過したが尿路感染症の再発はない。

a. 左尿管瘤

b. 左低形成腎、右腎代償性肥大

図3 腹部CT (IP 後)

考 察

遺尿症のうちでも夜尿症に昼間尿失禁症や尿路感染症を伴うものは、何らかの腎尿路系の異常を基礎疾患に有することが多いと言われている^{1)~5)}。本症例では、左異所性尿管瘤、尿道狭窄および左低形成腎が認められた。

尿管瘤は尿路感染症と遺尿症双方の原因となることがある⁶⁾。異所性尿管瘤は完全重複腎盂尿管の尿管異所開口に伴うものが多いとされているが、一腎盂一尿管で異所性に開口したものに生じることもあり得る⁶⁾⁷⁾。今回の症例では膀胱頸部に開口していた。

尿管瘤の術後には再発や残存⁶⁾が認められることがあるため、術後にも十分な経過観察が必要であると考えられる。今回の症例では術後の再発もしくは残存が見逃された可能性があり、当院初診時には左尿管瘤が存在していた。

本症例の尿道狭窄は、膀胱頸部に開口している異所性尿管瘤の形成に伴う先天的なものとも、8か月時の膀胱尿管流入部形成術後の創の治癒機転に伴って生じた後天性のものとも考えられる。成因に関わらず、一般的に遺尿症の原因のひとつとして尿道狭窄の存在が挙げられる^{1)~4)}。本症例でも尿道切開術後に夜尿症が消失した。

尿管瘤や尿道狭窄には膀胱尿管逆流症を伴うことがあり、遺尿症や尿路感染症の原因となることがありうる。本症例では生後8か月時に左尿管瘤および左膀胱尿管逆流症が判明し、左尿管瘤切開術および尿管膀胱流入部形成術を施行されている。術後、膀胱尿管逆流症は消失し、逆流の再発がないことを定期的に他院で確認されており、9歳時(2005年8月)、10歳時(2006年8月)に施行したVCGでも膀胱尿管逆流症は認めなかった。

今回の症例では、左腎は皮質の菲薄化がないことから

先天性の低形成腎と考えられる。低形成腎自体は腎機能低下が進行しない限り無症状であることがほとんどである。今回の症例でもクレアチニクリアランスや尿濃縮力は保たれており、尿路感染症や遺尿症の原因としては考えにくい。本症例では7か月後にbreak through infectionを認めたため、抗生剤の予防内服を行った。

尿管は尿管芽(中腎由来)から発生する。一方、腎臓は尿管芽から発生した集合管系と後腎中胚葉から発生したネフロンから成る。本症例では異所性尿管瘤と低形成腎が同側に存在することから、中腎管発生の異常によって二つの形態異常が生じた可能性がある。このように発生学的異常により複数の腎尿路系異常が合併することがあることから、本症例のように治療に抵抗する遺尿症⁸⁾や反復性尿路感染症に対しては他の腎尿路奇形の合併を疑って再度評価を必要とする場合があると考えられる。また、今回の症例では切開術後であるにも関わらず尿管瘤が認められており、経時的な観察のためにも膀胱鏡検査が有用であったと考えられる。

結 び

1. 反復性尿路感染症と遺尿症を合併した9歳女児に、左異所性尿管瘤、尿道狭窄、左低形成腎が認められた。
2. 昼間尿失禁症に対してdistigmine bromideとprazosin hydrochlorideが有効であった。
3. 抗生剤予防内服により尿路感染症の再発は抑制された。
4. 夜尿症が持続していたが、尿道切開術後に消失した。
5. 治療に抵抗する遺尿症と反復性尿路感染症に対して、膀胱鏡による再精査が必要であった。

なお、本論文の要旨は第43回日本小児腎臓病学会(2008年6月13日, 福岡市)にて口演した。

日本小児腎臓病学会の定める基準に基づく利益に関する開示事項はありません。

文 献

- 1) 河内明宏, 津ヶ谷正行, 相川 務, 赤司俊二: 日本夜尿症学会—夜尿症診療のガイドライン. 夜尿症研究 10; 5-14, 2005.
- 2) 河内明宏, 内藤泰行, 三木恒治: 夜尿症に関する最近の知見. 日児腎誌 20: 159-163, 2007.
- 3) Hjalmas K, Arnold T, Bower W, Caione P, Chiozza LM, von Gontard A, Han SW, Husman DA, Kawauchi A, Lackgren G, Lottmann H, Mark S, Rittig S, Robson L, Vande Walle J, Yeung CK: Nocturnal enuresis: an international evidence based management strategy. J Urol 171: 2545-2561, 2004.
- 4) Venulakonda V, Jones EA: Primer: diagnosis and management of uncomplicated daytime wetting in children. Nat Clin Prac Urol 3: 551-559, 2006.
- 5) Caldwell PHY, Edgar D, Hodson E, Craig JC: Bedwetting and toileting problems in children. Med J Aust. 182: 190-195, 2005.
- 6) Shokeir KK, Nijman RJM: Ureterocele: an ongoing challenge in infancy and childhood. BJU International 90: 777-783, 2002.
- 7) Berrocal T, Lopez-Pereira P, Arjonilla A, Gutierrez J: Anomalies of the distal ureter, bladder, and urethra in children: embryologic, radiologic, and pathologic features. RadioGraphics 22: 1139-1164, 2002.
- 8) Nevés T: The evaluation of therapy-resistant enuresis: a review. Upsala J Med Sci 111: 61-72, 2006.

An ectopic ureterocele, an urethrostenosis and a hypoplastic kidney in a girl with urinary tract infection and enuresis

*1Department of Pediatrics, Nishibeppu National Hospital

*2Department of Urology, Fukuoka Children's Hospital and Medical Center for Infectious Diseases

Department of Urology, Faculty of Medicine, Oita University

Atsumi Uemura*¹, Misako Hiramatsu*¹, Yasuyuki Akita*²

Both urinary tract infection (UTI) and enuresis (nocturnal enuresis and urinary incontinence) are common issue on children and often caused by urogenital anomalies, so that we should carefully make a differential diagnosis and evaluation. We here present a case of a girl suffered from multiple UTI and enuresis with a left ectopic ureterocele, an urethrostenosis and a small left kidney.

A 9-year-old girl was admitted to the emergency department for fever of 40.2°C with frequent urination, sense of residual urine and abdominal pain. Urinalysis exhibited an elevated count of white blood cells. She was administered on antibiotics for pyelonephritis and her complaints and the pyuria were resolved. She also troubled with enuresis totalis. We found that she had a left ureterocele and that her left kidney was small and hypoplastic. No vesicoureteral reflux was observed, but there was residual urine and she had a weak sense of urination compared to the intrabladder pressure.

With a diagnosis of unstable bladder, distigmine bromide and prazosin hydrochloride were started, and the diurnal urinary incontinence disappeared. Because a breakthrough infection occurred, we started to give her prophylactic dose of cefaclor. Since then she had no UTI. A year later the nocturnal enuresis continued. An urethrostenosis was found with cystoscopy and an urethrotomy was performed. The left ureterocele was found to open ectopically at the neck of bladder. She does not receive medication any more for more than a year after the urethrotomy and she is free from nocturnal enuresis and UTI.

If there is a therapy-resistant enuresis with a urogenital anomaly (anomalies), it should be recommended to administer cystography or other procedure available to reevaluate the status of the present anomaly (anomalies) and to make clear whether there would be other anomalies.

Key words : ureterocele, urethrostenosis, hypoplastic kidney, urinary tract infection (UTI), enuresis