●症例報告●

異所性尿管瘤との鑑別に苦慮した閉塞性異所開口尿管の3か月女児

福井 晨介¹・河口亜津彩¹・西中 一幸²・荒木 義則¹

(受付日: 2019年7月16日 採用日: 2019年11月19日)

要 旨

閉塞性異所開口尿管の著明な拡張は診断を困難にする場合がある。我々は尿うっ滞による尿路感染が発見の契機となり、異所性尿管瘤との鑑別に苦慮した閉塞性異所開口尿管の一例を経験した。症例は0歳3か月女児。不明熱の精査加療目的で当科入院し、上部尿路感染症と診断した。造影CTでは両側重複腎盂尿管および左上尿管の蛇行／拡張所見を認め、膀胱内には造影効果のない嚢胞性腫瘍を認めた。両側完全重複腎盂尿管および左上腎異所性尿管瘤と考え、経尿道的尿管瘤切開術を予定した。しかし術中膀胱鏡では膀胱内に嚢胞性腫瘍を認めず、異所性尿管瘤は否定され、膀胱頸部近傍の尿道後壁に左上腎由来の尿管口を認めた。両側完全重複腎盂尿管および左上腎由来異所開口尿管と診断し、後日左上腎-左下腎尿管尿管吻合術を施行した。以後は尿路感染なく経過している。膀胱内嚢胞性腫瘍を認めた際は閉塞性異所開口尿管を鑑別に加え、精査する必要がある。

序 言

異所開口尿管とは、尿管が膀胱三角部の正常位置以外に開口する状態を指し、女児では持続的尿失禁で発見されることが多い¹⁾。異所性尿管瘤とは尿管口または尿管瘤壁が膀胱頸部を越えて遠位まで進展しているものをいう¹⁾。異所開口尿管と異所性尿管瘤に対する治療は異なり、両者を鑑別することは治療の選択において重要である。閉塞性異所開口尿管の著明な拡張は画像検査による

鑑別を困難にする場合がある²⁾。閉塞性異所開口尿管と異所性尿管瘤の鑑別が困難な場合、それぞれの画像所見の特徴に注目すべきと考える。今回我々は尿うっ滞による尿路感染が発見の契機となり、異所性尿管瘤との鑑別に苦慮した閉塞性異所開口尿管の一例を経験したため報告する。

症 例

症例: 0歳3か月, 女児

現病歴: 発熱を認め近医で加療されていたが解熱なく、精査加療目的で第7病日に当科入院となった。

周産期歴: 胎児超音波検査で異常の指摘なし。在胎40週5日、頭位経膈分娩、出生時体重3162g

入院後経過: 表1の検査を施行し、カテーテル採取した尿の培養検査で *Klebsiella pneumoniae* (1×10^6 CFU/ml) が同定され上部尿路感染症と診断した。外陰部診察では外尿道口からの嚢胞状粘膜脱出(図1)を認めた。粘膜脱出は常にはみられず、排尿時にいきむ際にのみ間欠的にみられた。日常の排尿には支障がなかった。

腹部エコーで腎盂尿管の拡張を認めたため、造影CT検査を施行した。造影CT検査では両側重複腎盂尿管および左上尿管の蛇行／拡張所見を認めた。膀胱内には造影効果のない嚢胞性腫瘍を認め、異所性尿管瘤を疑った(図2)。膀胱エコーでも膀胱内腔を占拠する尿管瘤を疑う所見であった(図3)。膀胱尿道カテーテルを留置し抗菌薬(Cefmetazole)の投与を行い、投与後30時間で解熱し、炎症反応の改善を認めた。退院後に施行した排尿時膀胱尿道造影では、膀胱内球状陰影欠損があり他の画像所見と合致した。膀胱尿管逆流は認めなかった(図4)。DMSAシンチでは左上腎の広汎な集積低下を認め、左上腎の分腎機能は左腎全体の2.51%であった。

Key words: 閉塞性異所開口尿管 / 異所性尿管瘤 / 不明熱 / 膀胱内嚢胞 / 重複腎盂尿管

¹ 国立病院機構北海道医療センター小児腎臓病センター、² 北海道立子ども総合医療・療育センター泌尿器科
連絡著者: 〒078-8510 旭川市緑ヶ丘東2条1丁目1番1号
旭川医科大学小児科学講座 福井晨介

E-mail: shinsuke1229hukui@gmail.com

doi.org/10.3165/jjpn.cr.2019.0157

表 1 入院時検査所見

〈生化学〉		〈血算〉		〈尿〉	
白血球数	19,900 / μ l	TP	6.0 g/dl	生化学	
Baso	0 %	Alb	4.1 g/dl	比重	1.008
Eosino	0.5 %	AST	42 U/L	反応 pH	6
Stab	3.5 %	ALT	32 U/L	潜血反応	1+
Seg	72 %	LDH	238 U/L	ケトン定性	(-)
Lympho	18 %	クレアチニン	0.21 mg/dl	糖定性	(-)
Mono	5.5 %	尿酸	3.1 mg/dl	蛋白定性	1+
赤血球数	3.74×10^6 / μ l	尿素窒素	9 mg/dl	亜硝酸塩/定性	(+)
血色素量	10.2 g/dl	Na	137 mmol/L	白血球試験	(3+)
ヘマトクリット	31 %	K	4.6 mmol/L	沈渣	
血小板数	62.5×10^4 / μ l	Cl	106 mmol/L	赤血球	5-9 /HPF
		CRP 定量/LA	4.82 mg/dl	白血球	100 以上 /HPF
		β 2MG-血清	2.1 mg/L		
		プロカルシトニン	5.82 ng/ml	〈細菌培養〉	
				血液：陰性	
				カテーテル尿：	K.pneumoniae 10^6 CFU/ml

図 1 外尿道口からの嚢胞状粘膜脱出(⇒)。

以上より両側完全重複腎盂尿管および左上腎異所性尿管瘤と考え、全身麻酔下に経尿道的尿管瘤切開術を施行することとなったが、手術当日の膀胱鏡では膀胱内に嚢胞性腫瘍を認めず、異所性尿管瘤は否定された。同時に膀胱頸部近傍の尿道後壁に尿管開口部を認め、開口部よりカテーテルを挿入し造影を行ったところ、左上腎由来の尿管口であった(図 5)。

以上より両側完全重複腎盂尿管および左上腎由来異所開口尿管と診断した。予防的抗菌薬投与下に保存的に経過観察したが初回尿路感染 1 か月後に発熱、排尿時にいきみを認め、緑色膿を自排尿に認めた。異所開口尿管の所属腎および所属腎以外の腎臓の水腎症の程度は初回尿路感染時と同様であった。分泌物培養では *Serratia marcescens* 10^3 CFU/ml が同定され、尿路感染症と診断し加療を行った。治療後、膀胱レベルでの左上腎と左下腎の尿管尿管吻合術を施行した。上腎由来の尿管を切断し下腎由来の尿管と膀胱近位部で端側吻合し、膀胱と交通させた。上腎由来の尿管の尿道開口部側は摘出せず、縦に切開を加え管腔構造を開き、そのまま閉創した。以後は尿路感染なく経過している。外尿道口からの嚢胞状粘膜脱出も認められていない。

考 察

異所開口尿管とは、尿管が膀胱三角部の正常位置以外に開口する状態を指す¹⁾。異所開口尿管の発生頻度は 0.05% との報告があり³⁾、性差については本邦では 7:1、欧米では 3:1 で女兒に多く、女兒の開口部は陰、陰前庭、尿道、膀胱頸部、Gartner 管、子宮・子宮頸部、外尿道口の順に多いとされる⁴⁾。欧米では約 80% に重複尿管を合併すると報告されているが、本邦では 65~70% が単一尿管であり、人種差を認める⁵⁾。女兒の場合、膀胱頸部への異所開口以外では持続的な尿失禁を認めるため、診断の契機としては持続性尿失禁が症状として最も多い。

異所性尿管瘤とは、尿管口または尿管瘤壁が膀胱頸部

図2 造影CT検査:両側重複腎盂尿管(a)および左上半腎尿管の蛇行／拡張(b)があり,膀胱内に造影効果のない嚢胞性腫瘍(c)(d)を認めた.

図3 超音波検査:膀胱内に隔壁あり(⇒).

図4 排尿時膀胱尿道造影:膀胱尿管逆流を認めず(a),膀胱内球状陰影欠損あり(b, c).

を越えて遠位まで進展しているものをいう¹⁾。尿管瘤は4:1で女児に多く, 80%が重複腎盂尿管に伴うとされ, 尿管瘤の80%が異所性尿管瘤であるとされる⁶⁾。本症例は外陰部診察で認めた外尿道口からの嚢胞状粘膜脱出の

所見から異所性尿管瘤を疑った。

異所開口尿管と異所性尿管瘤の鑑別には造影CT検査や腎および膀胱超音波検査, 排尿時膀胱尿道造影, MR urographyなどの画像的検索が行われる。両者の画像所

図5 膀胱内視鏡所見：膀胱頸部近傍の尿道後壁に尿管開口部あり(a, ➡).
カテーテル挿入後尿管造影：拡張した左上腎由来尿管(b).

	異所開口尿管	異所性尿管瘤
①腫瘍の膀胱内突出部分	膀胱筋層あり・厚い	粘膜2枚分・薄い
②腫瘍の辺縁	くびれなし・軽度隆起	くびれあり・バルーン状
③腫瘍の後壁	尿管壁1枚分・薄い	膀胱筋層あり・薄い
④所属尿管	単一尿管であることが多い(本邦)	重複尿管の一方であることが多い

図6 異所開口尿管と異所性尿管瘤の鑑別における画像的要点のシェーマ
(文献2を基に著者作成)

見には、①腫瘍の膀胱内突出部分、②腫瘍の辺縁、③腫瘍の後壁、④所属尿管という4つの要点に違いがある²⁾(図6)。①腫瘍の膀胱内突出部分は異所開口尿管では膀胱筋層があるために厚いが、異所性尿管瘤では粘膜2枚分と薄い。②腫瘍の辺縁は異所開口尿管ではくびれがなくやや隆起している程度であるが、異所性尿管瘤ではくび

れがありバルーン状になっている。③腫瘍の後壁は異所開口尿管では尿管壁1枚分で薄いのにに対し、異所性尿管瘤では薄い膀胱筋層を認める。④所属尿管は異所開口尿管では本邦においては単一尿管であることが多いが、異所性尿管瘤では重複尿管の一方であることが多い。以上の4つの画像的要点に注目して両者を鑑別できると考える。

図7 通常時(a), 腹圧上昇時(b). 拡張した下部尿管が尿道周囲の疎な結合組織より滑脱し尿道壁を内部より圧迫することで, 外尿道口より嚢胞状に尿道粘膜が露出した.

本症例では左上腎由来異所開口尿管が膀胱後壁に接し, 膀胱頸部近傍の尿道後壁に開口した. 一般的に異所開口尿管は持続的に尿排泄を行っているが, 本症例では諸家の報告⁷⁾⁻⁹⁾と同様に異所開口尿管が尿道の括約筋機構の中に開口し, 筋層により開口部が圧迫され, 尿うっ滞が起き, 尿管の著明な拡張を認めたと考える. 尿うっ滞により拡張した閉塞性異所開口尿管 (obstructive ectopic ureter) による膀胱後面の壁外性圧迫は一見して尿管瘤様の膀胱内嚢胞性腫瘤として描出されることがあり, 異所性尿管瘤との鑑別を要する. 本症例では主に膀胱超音波検査に基づき異所性尿管瘤と診断したが, 閉塞性異所開口尿管を鑑別に挙げたうえで, 他の画像検査所見を前述の画像的要点に注目して仔細に検討していれば鑑別することができた, あるいは閉塞性異所開口尿管を否定できないという診断に至った可能性はある.

異所開口尿管と異所性尿管瘤の治療は大きく異なる. 前者の治療は腎機能の有無および開口部位によって開腹手術または腹腔鏡手術で腎摘除術や膀胱尿管新吻合術や尿管尿管吻合術を施行するのが一般的である¹⁰⁾¹¹⁾. 後者は内視鏡的に経尿道的尿管瘤切開術を行うことが多い¹²⁾. 本症例では当初は異所性尿管瘤と診断し, 全身麻酔下に経尿道的尿管瘤切開術を予定していたが, 術中内視鏡所見にて閉塞性異所開口尿管と診断を改め手術を中断した. 後日, 再度全身麻酔下に開腹尿管吻合術を行った. 全身麻酔は3か月女児にとっては特に侵襲が大きな処置であり不可避でない限り頻回な施行は避けるべきである. 術前診断の重要性をあらためて認識した.

外陰部診察で認めた外尿道口からの嚢胞状粘膜脱出は, 女児の異所性尿管瘤が膣から脱出した際に高頻度に認められる症状であり¹³⁾, 異所開口尿管では非典型的なため, 両者の鑑別を困難にした. 腹圧上昇時にのみ認められた所見であり, 手術後には認められなくなったことから, 拡張した下部尿管が尿道周囲の疎な結合組織より

滑脱し尿道壁を内部より圧迫することで, 外尿道口より嚢胞状に尿道粘膜が露出したものと考えられた(図7).

結 論

膀胱内嚢胞性腫瘤を認めた際は閉塞性異所開口尿管を鑑別に加え, 画像的要点に注目して精査する必要がある.

本論文は第53回日本小児腎臓病学会学術集会(2018年, 福島)で演題名「尿管異所開口と異所性尿管瘤との鑑別に苦慮した生後3か月女児」で口頭発表した内容に基づき改変したものである.

「日本小児腎臓病学会の定める基準に基づく利益相反に関する開示事項はありません。」

参考文献

- 1) 久松英治: 異所開口尿管・尿管瘤. 泌外 2014; 27(特別): 174-175.
- 2) 中井秀郎: 上部尿路拡張. 小児泌尿器科外来, 古田修監修, 川村猛編集, 東京, メジカルビュー, 2003: 56-71.
- 3) 兼松明弘, 山本新吾: 異所開口尿管. 小児外科 2012; 44: 355-359.
- 4) 寺田為義, 新川一雄, 内藤 威, 片山 喬: 共通尿生殖洞を伴う尿管異所開口の1例—本邦尿管異所開口648例についての統計的観察—. 泌紀 1988; 34: 508-513.
- 5) 藤方史朗, 篠森健介, 二宮 郁, 岡本賢二郎, 山師 定, 菅政治, 大岡啓二: 成人女性における単一異所開口尿管を伴う低形成腎に対して後腹膜鏡下腎摘除術を行った1例. 西日泌 2006; 68: 504-507.
- 6) Schluskel RN. and Retik AB: In Campbell-Walsh Urology 9th ed, edited by Alan JW, Philadelphia, Saunders, 2007: 3383-3422.
- 7) Koyanagi T, Hisajima S, Sakashita S, Goto T, Tsuji I: Ureteral ectopia in vestibule without urinary incontinence. Urology 1980; 16: 508-510.
- 8) 吉岡 優, 岡本英一, 野島道生, 井原英有, 島 博基, 生駒文彦, 島田憲次: 尿失禁を伴わない右異所開口尿管の1例. 泌紀 1992; 38: 945-948.
- 9) 松本成史, 島田憲次, 細川尚三, 松本富美, 紺屋英児: 尿失禁を伴わない膣前庭部異所開口尿管の1例. 泌紀 1996; 42: 965-968.
- 10) Wang DS, Bird VG, Cooper CS, Austin JC, Winfield HN: Laparoscopic upper-pole heminephrectomy for ectopic ureter: surgical technique. J Endourol 2003; 17: 469-473.
- 11) 沼倉一幸, 忠地一輝, 下田次郎: 完全重複腎盂尿管をともなった異所開口尿管を経尿道的に治療した1例. 西日泌 2008; 70: 609-613.
- 12) Keating MA: Ureteral duplication anomalies: ectopic ureters and ureteroceles. The Kelalis-King-Belman Textbook of Clinical Pediatric Urology, 5th ed, edited by Steven GD, UK, Informa UK Ltd, 2007: 618-631.
- 13) 柿崎秀宏: 小児泌尿器科学 異所開口尿管, 尿管瘤. 新図説泌尿器科学講座. 第1版 第5巻, 吉田修監修, 小柳知彦ほか編集, 東京, メジカルビュー, 1999: 164-175.

A case of obstructive ectopic ureter in a 3-month-old girl
with initial tentative diagnosis of ectopic ureterocele

Shinsuke Fukui¹, Azusa Kawaguchi¹, Kazuyuki Nishinaka², Yoshinori Araki¹

¹Department of Pediatric Nephrology, National Hospital Organization Hokkaido Medical Center

²Department of Urology, Hokkaido Medical Center for Child Health and Rehabilitation

The extreme dilatation of obstructive ectopic ureters makes diagnosis difficult. We report a case of an obstructive ectopic ureter difficult to distinguish from an ectopic ureterocele, causing urinary tract infection due to urinary stasis. A 3-month-old girl with fever of unknown origin was admitted and found to suffer from an upper urinary tract infection. Bilateral complete duplex kidneys and ureters were detected by contrast-enhanced CT. Left upper renal ureteral meandering and dilation were observed. A scan without contrast materials showed a cystic tumor in the bladder. We assumed an upper left renal ectopic ureterocele, and attempted to perform transurethral ureterotomy. However, the intraoperative cystoscope showed no cystic mass in the bladder, and the ureter derived from the left upper kidney was found to be connected to the posterior wall of the urethra near the bladder neck. We eventually confirmed an obstructive ectopic ureter connected to the left upper kidney and performed an upper-lower left renal ureteroureteral anastomosis. She has not had urinary tract infection since the surgery. When an intravesical cystic tumor is observed, it is necessary to examine the possibility of an obstructive ectopic ureter.

Key words: obstructive ectopic ureter, ectopic ureterocele, fever of unknown origin, a cystic lesion in the bladder, double renal pelvis and ureter