腎 血 管 腫

南 武
田 口 陽 世
東京慈恵会医科大学泌尿器科教室 (主任: 南 武教授)
増 田 富 士 男
小 林 睦 生

THREE CASES OF HEMANGIOMA OF THE KIDNEY

Takeshi Minami, Akiyo Taguchi, Hujio Masuda and Chikao Kobayashi

From the Department of Urology, Jikei University School of Medicine.

(Director: Prof. T. Minami)

The first case was 38-year-old housewife with the chief complaint of recurrent gross hematuria for 10 years prior to admission. Pelvic examination revealed no evidence of the bleeding or disease.

The second case, 64-year-old man, was admitted with gross hematuria and right flank pain. This patient had noted hematuria of 3 weeks' duration 4-1/2 years previously. Intravenous pyelogram showed some irregularity of the middle calyx on the right side.

The third case, 27-year-old woman, was admitted complaining of hematuria. She had eight episodes of gross hematuria for 5 years. Intravenous and retrograde pyelograms were repeated and found to be normal.

In three cases, transfemoral aortograms were taken, and they all showed a localized pooling-like shadow in the tumor area. Nephrectomy was performed in these cases, and pathological diagnosis was hemangioma of the kidney.

Eighteen cases of hemangioma of the kidney are collected in the Japanese literatures including our three cases, and some clinical and pathologic observation are given. But, if more exhaustive examination of the kidney were made, more cases of so-called essential hematuria could be found to be due to hemangioma, and study of aortogram may prove to be of great value in the diagnosis of hemangioma of the kidney.

I はじめに

腎血管腫は稀な疾患とされており、本邦に於ては、剖検例の2例を加えて僅かに15例の報告をみるにすぎない。しかし我々は従来所謂特発性腎出血と診断された症例の中に、本疾患がかなり含まれているのではないかと考えていたが、最近腎動脈撮影等により臨床的に腎血管腫と診断し得た3例を経験した。ここにそれ等の症例を報告するとともに、腎血管腫について些か文献的考察を試みた。

II 症 例

症例1.

患者: 高橋某, 38才, 家婦.

初診: 昭和38年6月20日.

主訴: 全血尿.

現病歴: 最初の血尿は初診の約10年前, 畑仕事にこり, 凝血のため尿閉となり導尿をうけた程であつた。血尿は約1週間持続した。第2回目は昭和38年4月5日, 排尿しようとしたところ血塊が出たのみで尿閉となり導尿をうけた。その時も肉眼的血尿が約1週間つづいた。第3回目は, 昭和38年6月20日午後3時頃全血尿があり, 同時に左側腹部痛を伴つた。その後3回程血尿が続いたが, 午後10時半頃また凝血で尿閉となり, 下腹部に強い膨満感が起つたので当科に入院した。なおこの時の血尿は, 6日後には肉眼的には認められなくなった。以上のような間歇的な高度の血尿の他は, 特記すべき泌尿器系の症状はなかつた。

既往歴：1) 痔核，昭和22年頃より排便時の出血に気づき，2年前某院に痔核の手術をうけ，昭和38年5月には当院外科で再び内痔核及び外痔核の手術をうけた。2)

静脈瘤，時期は判然としないが，両下肢の皮膚血管の拡張に気づいている。また何等原因なく上肢及び下肢の皮下に出血したことがある。3) 高熱，3～4年前より長いバス旅行をすると必ず40℃前後の発熱があり，1～2日つづいた。

家族歴：母に両下肢の著明な静脈瘤がある以外には特記すべきことはない。

現症：体格栄養共に中等度，眼瞼結膜に貧血なし。頸部及びそけい部リンパ腺触れず。両下肢に皮膚血管の拡張を認めるが，その他の皮膚及び可視粘膜に発疹，血管腫はない。胸部は理学的に異常なく，血圧は最高130mm，最低70mm（水銀柱）。左腎部に自発痛，圧痛あるも腎は両側とも触れず，外陰部も正常。

諸検査事項：

1) 尿所見：肉眼的血尿，性6.2，蛋白300mg/dl，赤血球（++），白血球（-），上皮細胞（少数），細菌（-）。

2) 腎機能検査：Fishberg氏濃縮試験は最高比重1030，PSP試験では15分値25%，2時間総計65%で正常。

3) 膀胱鏡所見：6月21日の所見では三角部に鳩卵大の血塊があり，また疼痛が強いため血尿側は確認出来なかつた。6月28日は血尿（-），膀胱粘膜は異常なく，尿管口の位置，収縮及び尿線も正常。尿管カテーテルismusは両側とも25cm挿入容易。青排泄試験は右側初発4分20秒，濃青7分，左側初発5分35秒，濃青10分37秒で幾分左の方が遅延していた。

4) レ線検査：腎・膀胱部単純撮影では結石等の異常陰影は認められなかつた。排泄性腎盂撮影では左下腎杯及び腎盂中央部の描出が薄い他，異常はなかつた。逆行性腎盂撮影で左腎盂，腎杯が長軸に延びていることが分つた（図1）。

腎動脈撮影では左腎中央部にpuddling様の異常像がみられた（図2）。

5) その他の検査成績：血液は赤血球数 389×10^4 ，血色素量（Sahli法）78%，白血球数7900，血小板数 39×10^4 ，出血時間3分，凝固時間7分30秒，プロトロンビン時間（1段法）10.2秒，ロンボテスト（Owren）37秒，血餅収縮度63%。血液化学所見は尿素窒素18mg/dl，Cl⁻107mEq/L，Na⁺142.2mEq/L，K⁺3.9mEq/L，Ca²⁺4.8mEq/L，総コレステロール238mg/dl，G.O.T. 21単位

ml，G.P.T. 15単位ml，総蛋白量7.5g/dl，A/G 1.2。赤血球沈降速度1時間値1mm，2時間値7mm，血清梅毒反応陰性。

入院後経過：上記の諸検査，特に左腎盂像の延長，腎動脈撮影でpuddling様の像を認めることと，血尿の性状（10年間に亘る間歇的な強血尿）より左腎血管腫と診断し，7月29日左腎剔除術を施行した。

腰椎麻酔の下に型の如く左腰部斜切開にて腎に達したが，まず驚いたことには，卵巣静脈が高度に怒張していた。腎動脈はAortaより分れてすぐ2本になり，更にその各々が2本に分れて腎に入っていた。腎静脈は2本の枝がVena cavaに入る前で1本になつていた。腎の外見上は，血尿の原因と思われるものを認めることは出来なかつた。

術後経過は良好で9月28日退院したが，その後現在まで血尿の再発はない。

剔除腎所見：

1) 肉眼的所見：重量170g，大きさは $11 \times 6 \times 3.5$ cm。腎実質前面は長径に比し巾が狭く，また腎盂は腎の前面よりでており，腎外腎盂は異常に大きくなつていた。後面は殆んど正常であつた。腎動脈の各分枝より60%ウログラフィンを1.5cc注入してレ線撮影を行つたところ，術前の撮影でpuddling様の像を認めた部位に一致して，血管の異常増生を認めた。（図3）。

剖面では，すべての乳頭周囲の疎性結合組織即ち小腎杯に接している部に，固定標本で3～4mm以下の拡張した血管断面を多数認めた（図4）。

2) 組織学的所見：拡張せる動静脈のうちあるものは小腎杯粘膜直下にあり，動脈壁には正常構造を示すものもあるが，一方少なからざる血管では，中膜の全くの欠除或いは中膜筋層のびまん性或いは限局性筋細胞欠除，結合組織による置換等を示していた。図5の如く，かかる筋層を欠除せる拡張動脈が腎杯粘膜の上皮直下にみられた。静脈にも同様に筋層の欠除乃至發育不全等の異常が認められた。動脈の内膜には，弾力線維及び結合組織線維の増生よりなる肥厚，所謂Fibroelastic intima thickeningを認めるものもあつた（図6）。腎実質は正常であるが，皮質の巣状円形細胞浸潤と腎盂粘膜下間質の細胞浸潤を認めた。

以上の組織学的所見より病理組織学的には，屢々壁筋層の發育異常を伴つた動静脈の拡張であり，腎血管腫と総称されるものの中で，White等（1946）⁴⁹⁾の云うPlexiform hemangiomaに属するものと診断された。

症例2.

患者：大田某，64才，男子。

初診：昭和40年1月23日。

主訴：血尿，右側腹部痛。

現病歴：昭和35年8月に突然肉眼的血尿と右側腹部痛が生じ，尿路結石の疑で診療をうけ，血尿は約20日間消失した。その後血尿等の自覚症は全くなかったが，4年半後の昭和40年1月22日再び肉眼的血尿と右側腹痛を生じ，翌23日来院した。

既往歴：特記すべき事はない。

家族歴：姉が子宮癌で死亡。その他特にない。

現症：体格栄養共に良好。眼瞼結膜に貧血はない。皮膚及び可視粘膜に血管腫乃至血管の拡張はみられなかった。呼吸，脈搏は共に正常で，胸部は理学的に異常を認めなかった。血圧は最高130mmHg，最低88mmHg。腎は両側とも触れないが，右尿管走行部に軽い圧痛を認めた。その他の泌尿性器は正常。

諸検査事項：

1) 尿所見：黄色微濁，性6.4，蛋白(一)，糖(一)，赤血球(+)，白血球(一)，上皮細胞(少)，細菌(一)，結核菌培養陰性。

2) 腎機能検査：Fishberg氏濃縮試験は最高比重1022，PSP試験では15分値25%，2時間総計70%で略正常であつた。

3) 膀胱鏡所見：極く軽度の肉柱形成をみる以外膀胱粘膜は著変なく，尿管口の位置，収縮力及び尿線は正常であつた。

4) レ線検査：腎・膀胱部単純撮影で異常なく，排泄性腎盂撮影でも左側は正常。しかし右腎は一見正常のようであるが，よくみると中腎杯に軽度の変形乃至溢流像と思われる変化が認められ，ここに血尿の原因となる病巣があるのではないかと思われた(図7)。腎動脈撮影でも左腎動脈像は異常ないが，右腎では腎中央部に血管の拡張，蛇行乃至puddlingおよびpooling様の像がみられた(図8)。

5) その他の検査成績：血液は赤血球数 452×10^4 ，血色素量15.4g/dl，白血球数5100，血小板数 16.4×10^4 ，出血時間1分30秒，凝固時間6分30秒。血液化学所見は尿素窒素15.2mg/dl，Cl 104mEq/L ，Na 143.5mEq/L ，K 4.4mEq/L ，Ca 4.8mEq/L ，総コレステロール183mg/dl，アルカリフォスファターゼ1.2単位，G.O.T.15単位ml，G.P.T.11単位ml，総蛋白量6.0g/dl，A/G1.3。赤血球沈降速度は1時間値7mm，2時間値20mm，血清梅毒

反応陰性。

臨床診断：上記の諸検査より右腎血管腫と診断し，2月17日右腎を剔除した。

剔出腎所見：

1) 肉眼的所見：重量は170g，大きさは $11.3 \times 5.5 \times 4.0\text{cm}$ で外観は正常。図9はその水平断面にマツソン氏染色を行つたものであるが，腎盂腎杯周囲の粗鬆な脂肪及び結合織性の間質の中に，血管腫が大小さまざまな形の管腔として認められた。

2) 組織学的所見：大小さまざまな形の管腔とそれを囲む結合織よりなつている。その管腔は扁平な内皮細胞が一層に配列され，その周囲には弾力線維を含む比較的厚い筋層があり，動脈性血管腫であつた。また一部には管壁の菲薄な部及びAneurysma様に突出している部があり，乳頭部に近い腎杯粘膜下のこのような部より出血すれば，容易に血尿を招来すりものと考えられた(図10)。

3) 剔出腎に施行した動脈撮影でも第11図Aの如く，血管の蛇行，拡張乃至増生がみられ，それに逆行性腎盂撮影を併用したBでは，術前のレ線像と同じく中腎杯粘膜下に血管腫の存在がみられた。

症例3.

患者：保坂某，27才，女子。

初診：昭和40年8月31日。

主訴：全血尿。

現病歴：最初の血尿は昭和35年5月の月経時に生じたが，他に症状なく1日で消失した。その後初診までに7回の肉眼的血尿を経験したが，それらは何れも月経時及びその前後で約5日間宛つづいた。また同時に右腎部の疼痛，嘔気，食欲不振を伴つたほか，第3回目及び第7回目の際は血尿開始翌日より $38^{\circ} \sim 39^{\circ}\text{C}$ の高熱が数日つづいた。第8回目は凝血のため尿閉となつた。なお第2回及び第8回の血尿時には右腎よりの出血と確認されているが，更に2～3の病院で精査をうけ，排泄性腎盂撮影に著変なく，血液検査，骨髓穿刺所見も正常，婦人科的にも異常を認められず当科に紹介された。

既往歴：昭和31年に右眼底出血(原因不明)。

家族歴：父に脳出血，母に高血圧を認めるが，同胞7人には特記すべきことはない。

現症：体格中等度，栄養良好，眼瞼結膜に貧血なく，皮膚及び可視粘膜にも血管腫等の病的所見はなかった。呼吸，脈搏は共に正常。胸部は理学的に異常なく，血圧は最高130mmHg，最低80mmHg。腎，肝，脾も触れず。腹

图1 症例1. 逆行性肾盂摄影

图2 症例2. 肾动脉摄影

图3 症例1. 剔出肾动脉摄影

图4 症例1. 剔出肾剖面

图5 症例1. 病理組織

图6 症例1. 病理組織

図7 症例2. 排泄性腎盂撮影

図8 症例2. 腎動脈撮影

図9 症例2. 剔出腎剖面

図10 症例2. 病理組織

図 11

A : 症例2. 剔出腎動脈撮影

B : 症例2. 剔出腎動脈撮影+逆行性腎盂撮影

図12 症例3. 腎シンチグラム

図13 症例3. 逆行性腎盂撮影

図14 症例3. 腎動脈撮影

図15 症例3. 剝出腎剖面

図16 症例3. 剝出腎の動脈像

図17 症例3の病理組織

部触診にも異常なく、外陰部も正常であつた。

諸検査事項：

1) 尿所見：黄色清澄，アルカリ性，蛋白（－），糖（－），赤血球（－），白血球（±），上皮細胞（少），細菌（－），結核菌培養陰性。

2) 腎機能検査：Fishberg 氏濃縮試験は最高比重 1020，PSP 試験では15分値35%，2時間総計60%。右腎尿の滲透圧は 256mOsm/kg H₂O で左側（420mOsm/kg H₂O）に比べて低く，腎シンチグラムでも右腎は左腎より全般的に ²⁰³Hg-Neohydrin の沈着が少く，右腎尿細管機能は低下していた（図12）。

3) 膀胱鏡所見：膀胱粘膜は正常で青排泄試験では左右とも著変なく，尿管カラーテリウムは両側とも25cm挿入容易であつた。なお分腎尿の Papanicolaou 氏検査では悪性細胞を認めえなかつた。

4) レ線検査：腎・膀胱部単純撮影では結石等の異常陰影はなく，排泄性腎盂撮影では，3分像で右腎に軽度の排泄遅延をみたが，逆行性腎盂撮影で形態的異常はなかつた（図13）。

腎動脈撮影では左腎は正常。右腎は図14の如く下部に明らかな血管の拡張，蛇行 puddling が認められた。

5) その他の検査成績：血液は赤血球数 514×10^4 ，血色素量 14.0 g/dl，白血球数 3800，血小板数 21.4×10^4 ，出血時間 1分30秒，凝固時間 7分30秒，プロトロンビン時間（1段法）11.4秒，トロンボテスト（Owren）37.8秒，血餅収縮度 54%。血液化学所見は尿素窒素 17.8mg/dl，Cl 102mEq/L，Na 145.8mEq/L，K 5.3mEq/L，Ca 5.1mEq/L，総コレステロール 210mg/dl，アルカリフオスファターゼ 1.7単位，G.O.T. 9単位ml，G.P.T. 5単位ml，血清総蛋白量 7.4g/dl，A/G 1.9。赤血球沈降速度は1時間値 5mm，2時間値 10mm，血液梅毒反応は陰性。また自律神経機能試験は正常で，婦人科的にも異常はなかつた。

臨床診断：上記の諸検査，特に血尿の性状，腎盂レ線像，腎動脈レ線像及び尿 Papanicolaou 氏検査等の成績から右腎血管腫と診断し，10月29日右腎を切除した。

別出腎所見：

1) 肉眼的所見：重量115g，大きさ $11.5 \times 5.5 \times 3.5$ cmで外観は正常。剖面では下腎杯より乳頭にかけて，豌豆大の出血巣がみられた（図15）。

2) 組織学的所見：大小種々の血管の拡張，蛇行および増生がみられた。また毛細血管の部では海綿状血管腫の像を示し，全体として動静脈の奇型的性格の多い腎血

管腫と診断された（図16）。

3) 別出腎に施行した動脈撮影では，術前の腎動脈レ線像と同様の血管像がみられた（図17）。

III 考 按

1. 頻度。

腎血管腫は従来稀な疾患であると考えられている。Nürnberg¹⁷⁾ は 2,250例，Lubarsch¹⁷⁾ は 4,000例の剖検例中各1例の腎血管腫をみているのみであり，Riley 及び Swann³⁷⁾ は1939年1月1日迄に行つた Boston City Hospital での13,219例の剖検例で，1例も腎血管腫を認めていない。また Bell⁴⁾ は約 30,000 例の剖検例中，腎腫瘍全体としては 161例であるが，そのうち腎血管腫は僅か1例にすぎないことを報告している。

腎血管腫の第1例は Virchow⁴³⁾ が1867年に初めて剖検例を報告しているが，臨床的には1903年 Fenwick¹⁴⁾ が腎切除術により発見したものが最初である。Judd 及び Simon²¹⁾ は自験例1例を含めて12例を文献的に集計しており，Marks 及び Lazarus²⁵⁾ は1867年より1947年までの報告例70例について考察している。また McCrea²⁶⁾ は1951年に腎血管腫73例について分類，考察し，年齢，性，患側，症状，病巣部位について詳述しており，Wallach 等⁴⁴⁾ は更に12例を追加している。

本邦に於ては1911年福田²⁰⁾ が剖検例2例を報告し，臨床例では1923年大野³³⁾ が第1例を発表している。次いで黒田（和）²²⁾ は自家臨床例1例を含めて世界文献より88例を集め，これらについて詳細に臨床的並びに病理学的検討を加えている。その後現在迄阿部¹⁾，大越³²⁾，田中等⁴⁰⁾，土屋等⁴²⁾，土井等¹¹⁾，仁平³¹⁾，馬場等³⁾，山口⁵⁹⁾，竹内等³⁹⁾，三浦等²⁹⁾，蔡等⁴¹⁾ が臨床例各1例を発表し，我々の3例を合せても現在迄18例の報告があるに過ぎず，その詳細は表1の如くである。しかし後に述べる如く，現在所謂特発性腎出血と診断されるものを更に注意深く検索すれば，文献から考えられる以上に本症は多いものと思われる。

2. 発生

White and Braunstein⁴⁹⁾，Anderson et al²⁾，Ferguson et al¹⁵⁾ 等は腎血管腫を内皮細胞系を母体として発生した真性新生物と考え，Teleangiectasia や Varix のような単なる脈管の拡張と区別すべきことを主張している。なお White and Braunstein⁴⁹⁾ は表2の如き分類法をとり，腎血管腫を Renal vascular tumor の1型として分類している。しかし Hükel¹⁹⁾ のいう如く，毛細管拡張乃至静脈瘤性変化であるか，真性血管腫であるかを組織

表 1

	報告者	年 令*	性	患側	症 状	腎盂レ線像	腎 動 脈 像 レ 線 像	臨床診断	病 理 所 見
1	福 田 (1911)	45	♂	左					皮髓境界部の豌豆大の 海綿様血管腫
2	福 田 (1911)	28	♂						髓質の頭微鏡的海綿様 血管腫
3	大 野 (1923)	27 (19)	♂	右	血 尿			特発性 腎出血	上1/2の皮髓境界部の豌豆大の 海綿様血管腫
4	黒 田 (1949)	41 (39)	♀	左	血尿・頻尿	正 常		特発性 腎出血	下極錐体部の粟粒大血管腫
5	阿 部 (1952)	61 (61)	♀	左	血尿・腰痛	上腎杯の 陰影欠損		腎盂腫瘍	上腎杯乳頭部の豌豆大血管腫
6	大 越 (1954)	27 (15)	♂	右	血尿・腰痛	正 常		特発性 腎出血	上腎杯乳頭部の微細な 血管腫
7	田中・他 (1955)	41	♂	左				特発性腎 出血	下極海綿様血管腫
8	土屋・日東寺 (1957)	48 (33)	♀	左	血 尿	上腎杯の変形		特発性腎 出血	上腎杯乳頭部の粟粒 大血管腫
9	土井・古河 (1957)	20 (20)	♀	左	血尿・下腹痛 高血圧	腎盂下部及び 下腎杯の変形		腎 腫 瘍	腎実質下半部の鶏卵 大の海綿様血管腫
10	仁 平 (1958)	34 (32)	♀	左	血 尿	正 常		特発性腎 出血	下極乳頭先端の微細 な海綿状血管腫
11	馬場・阿曾 (1961)	31 (21)	♀	右	血 尿	正 常	変化を認め ず	特発性腎 出血	下極髓質の帽針頭大の 海綿状血管腫
12	山 口 (1962)	30 (30)	♀	左	側腹痛 顕微鏡的血尿	中腎杯の陰影 欠損		良性腎腫 瘍	中腎杯乳頭部の鶏卵 大血管腫
13	竹内・他 (1965)	44 (44)	♂	右	血 尿	腎盂尿管移行 部の陰影欠損	変化を 認めず	腎盂腫瘍	尿管粘膜下及び筋層中の 豌豆大の海綿状血管腫
14	三浦・宮村 (1966)	53 (53)	♀	右	血 尿	正 常	血管が重なり 集合している	腎血管腫	腎盂粘膜の小さい海 綿様血管腫
15	蔡 ・ 他 (1966)	18 (6)	♀	右	血 尿	腎盂の陰影 欠損		腎盂腫瘍	腎盂後壁の指頭大の血管腫、中・下腎杯間の腎 実質内に拡つている。
16	自験例 1	38 (28)	♀	左	血尿・尿閉 側 腹 痛	腎盂腎杯の 延長	puddling	腎血管腫	すべての乳頭周囲の腎杯 に接している部に3～4 mm以下の海綿様血管腫
17	自験例 2	64 (59)	♂	右	血尿・側腹痛	中腎杯の変形	血管の蛇行・ 拡張 puddling pooling	腎血管腫	腎盂粘膜下の小指頭 大の血管腫
18	自験例 3	27 (21)	♀	右	血尿・尿閉 腎 部 痛	正 常	血管の蛇行・ 拡張 puddling	腎血管腫	下腎杯乳頭部の豌豆 大の海綿様血管腫

* () は血尿開始時の年齢

表 2 White 等の分類

- I Renal vascular tumor
1. Benign
- 1) Capillary hemangioma
- 2) Plexiform hemangioma
- 3) Cavernous hemangioma
2. Malignant
- 1) Hemangiosarcoma
- 2) Hemangioblastoma
- II Telangiectasia, Varix

学的に区別することは必ずしも容易ではない。それらの差は Dorman and Fowler¹²⁾ のいう如く程度の問題であり、また Herbut¹³⁾ の言う如く臨床症状も同様であつて、血管腫と総称して差支えないと考える。

腎血管腫の成因に関しては、Virchow は“ imperfectly formed vessels ” に由来すると説き、Borst は所謂 Hamartom なる概念を取り入れて、先天性素因の存在の下に何等かの機因によつて起つた正常組織の変調であ

るとしている²²⁾。この先天性素因の存在は生後9日の新生児に血管腫のみられた Szecey and Flesch³⁸⁾ の例や、多発性血管腫合併症例 (Dean and MacCarthy¹⁰⁾, Wheeler⁴⁸⁾, Melicow²⁷⁾, Cirio⁸⁾) 等に於て著明にうかがわれる。一方 Dukes 等¹³⁾は慢性炎症及び局所性循環障害を原因とし、長期の炎症性刺激に対する血管反応、或いは先行する感染による皮髄境界部の癒着化が乳頭に血流のうづ滞を来たして “angiomatös” の変化を生ずると云っている。更に Nation 等³⁰⁾はかかる炎症性変化乃至血管異常を広く Allergy 性反応に基くと解釈している。しかし以上の如き考えは、いずれもあらゆる場合を説明し得るものではなく、血管腫の発生に関しては未だ定説と云うべきものは無いようである。

3. 部位、大きさ。

血管腫は腎の何れの部位にも発生し得るが、Weyrauch and Berger⁴⁶⁾ によると粘膜及び粘膜下37例 (48.7%)、髄質32例 (42.1%)、皮質7例 (9.2%) である。一方本邦例についてみると髄質が最も多く15例中10例である。また上極と下極では特に差はない。

腫瘍の大きさは種々で、顕微鏡的存在から腎の²/₃を占めるもの迄ある。その巨大なものとして Dalakopoulos⁹⁾ は腎の上²/₃を占める例を、Malashock and Kopp²⁴⁾ は12×5×5 cmの例を報告しており、本邦では土井等¹¹⁾及び山口⁵⁰⁾が鶏卵大のものを報告している。しかし大多数は豌豆大以下で、福田²⁰⁾の症例のごときは肉眼的には変化なく顕微鏡検査で始めて発見している。かかる小病巣の存在が、検索の不備により見落される恐れが多いことは想像に難くなく、このような小血管腫は実際には更に高い率で存在するものと思われる。

これ等の血管腫は大部分単発であるが、時に多発性血管腫が報告されている。阿部¹⁾によるとその比率は約10%であるが、このことは後述の治療面で問題となる。

4. 年令。

欧米では生後9日目という Szecey and Flesch³⁸⁾ の報告があるが、本邦では18才から64才まで各年代にみられており、その平均年令は38才である。

Rappoport³⁵⁾ は本症の80%は血尿の開始が40才以下で、悪性腎腫瘍の好発年令より若いことを指摘している。一方Wallach 等⁴⁴⁾はこれを否定し、87例中45例即ち52%のみが40才以下であり、年令は本症と腎悪性腫瘍との鑑別には役立たないと主張している。本邦に於ては40才以下は臨床16例中9例56%にすぎないが、その血尿開始時の年令についてみると15例中11例73%が40才以下

表3 年令・性別・患側

性別	計	年 令						患 側		
		0～19	20～29	30～39	40～49	50～59	60～69	右	左	不明
男	7	0 (2)	3 (0)	0 (0)	3 (1)	0 (0)	1 (0)	4	2	1
女	11	1 (1)	2 (3)	4 (4)	2 (0)	1 (2)	1 (1)	4	7	0
計	18	1 (3)	5 (3)	4 (4)	5 (1)	1 (2)	2 (1)	8	9	1

() は血尿開始時

で、Rappoport³⁵⁾ の報告と略一致しており、本症について年令を論ずる時は、血尿開始時を問題にすべきであると考える (表3)。

5. 性別、患側。

性別について、Anderson²⁾ や Waller⁴⁵⁾ は男子が女子よりも僅かに多いとしている。患側では、Mackey²³⁾ は左側にやや多くみられるとし、この理由として左腎の腎静脈は右側に比して長く、また大動脈の前面で交叉すること等により血行障害を起し易いためだと述べている。この点に関して、我々の第1例にみられた卵巣静脈の異常な怒張は興味深い。併し Wallach 等⁴⁴⁾は87例について性別、左右別には殆んど差異がないといっている。なお両腎にみられたのは、文献上 Weyrauch and Berger⁴⁶⁾ 及び Paletz and Sewell³⁴⁾ の2例があるにすぎない。

本邦報告例では18例中男子7例、女子11例であり、左右別では右8例、左9例、不明1例である (表3)。

6. 症状。

1) 血尿：臨床症状としては血尿が第一にあげられるが、殆んど必発の症状といつてよく、血尿の発生により初めて受診するのが普通である。血尿はこれという程の誘因なくして突然起り、間歇的に生ずるものと持続的なものがあるが、その期間は表4の如くで15例中5例は実に10年以上の経過を示している。間歇止血期間も種々であるが、黒田 (和)²²⁾は2年間血尿の継続した症例を

表4 血尿の期間

期 間	例 数
1年以内	5
1～3	2
4～6	2
7～9	1
10年以上	5

報告しており、馬場等³⁾の例は途中2カ月つづ2回止血しただけで15年間血尿が持続している。土屋等⁴²⁾の例では、15年間に亘り数カ月乃至2年の休止期をおいて度々血尿を繰返し、自験第1例では10年間、第2例では4年半の休止期の後に再び血尿をみている。Anderson 等²⁾の症例の如きは14年間の休止期の後に再び出血したといい、Rattino and Mohan³⁵⁾の例は実に36年間の経過を示している。

血尿の程度は顕微鏡的なものから純血様のものに至る迄、種々の程度があるが、本邦症例15例中14例は肉眼的血尿を主訴として来院している。残りの1例は左上腹部から左側腹部にかけての疼痛を訴えて来院し、検尿により顕微鏡的血尿が認められたが、以後手術時迄約70日間肉眼的血尿をみない。一方 Wheeland⁴⁷⁾は尿所見陰性であつたが皮質に血管腫があり、そのため腎周囲に血腫を生じた例を報告している。また Malashock and Kopp²⁴⁾は $12 \times 5 \times 5$ cmの巨大な血管腫が髓質にありながら、厚い線維性被膜に包まれて、生前に唯一回の血尿—これも性器よりの出血がむしろ考えられる—を生じたのみで、剖検で始めて確められた症例を報告している。

2) 疼痛：血尿について多いのは腎部乃至側腹部疼痛で、本邦では15例中8例にみられているが、これは凝血による上部尿路の通過障害によるものと考えられる。また Cid and Ercole⁷⁾は皮質内血管腫からの出血で腎周囲血腫を生じ、腎部激痛を訴えた例を報告している。

3) その他の症状：頻尿、排尿痛は一般にみられないが、我々の例の如く、凝血のため尿閉を来すこともある。また Hansen¹⁶⁾は高血圧を伴い、腎切除術により軽快した例を報告しているが、本邦でも土井等¹¹⁾の例は軽度の高血圧を合併している。

7. 合併症.

本症に特に関係のある合併症についての報告はないが、本疾患の発生が先天性素因に基づくという考え方から、腎以外の血管腫の存在は意義がある。

かかる症例としては、頭部レ線像に於て結節性硬化症をみた Dean and MacCarthy¹⁰⁾の例、Hippel-Lindau 氏病を有した Melicow²⁷⁾の例、皮膚血管腫のあつた Nothnagel と Wheeler⁴⁸⁾の例、膀胱血管腫を有した Cirio⁸⁾の例等がある。逆にこのような合併症の存在は、診断的見地より誠に重要であつて、Dean and MacCarthy¹⁰⁾の例はこれにより術前に診断が確定した症例であり、Cirio⁸⁾も亦、かかる合併症から腎血管腫の存在を予想したことを記載している。

本邦では、我々の第1例に下肢の皮膚血管の拡張及び痔核を認めている以外、他の体部の血管腫の合併をみた報告はない。

8. レ線像.

腎盂レ線像についてみると、本邦症例中記載のある14例中6例は正常である。他の8例には腎盂腎杯の陰影欠損、変形、溢流像がみられているが、多くは何れも軽度である。しかしこれらは腎血管腫に特有なものではなく、初期の腎腫瘍との鑑別は困難である。

次に、腎動脈撮影の施行されたものは我々の3例を含めて6例にすぎない。このうち2例は変化を認めていないが、我々の3例を含めて4例には血管腫は一致して明らかな血管の蛇行、拡張、或いは puddling 乃至 pooling 像が認められており、何れも術前診断確定の最大の根拠となつている。

9. 診断.

従来、本症を術前に診断することは極めて困難とされていたが、黒田(和)²²⁾によると88例中的確な診断を臨床的に下し得たのは Dean and MacCarthy¹⁰⁾の1例のみである。他には Cirio⁸⁾がその症例に於て、血管腫の疑

表5 臨床診断

診 断 名	例 数
特発性腎出血	7
腎血管腫	4
腎盂腫瘍	3
腎 腫 瘍	1
腎良性腫瘍	1

いを抱いたという記載をみるだけに過ぎない。しかも両者とも、多発性血管腫が他の体部に存在し、これが診断の重要な手掛りとなつている。その後も Paletz and Sewell³⁴⁾及び Butt and Perry⁶⁾が夫々臨床的に本症を疑つた例を報告しているにすぎない。本邦では術前、臨床的に腎血管腫と診断を確定し得たのは我々の症例1が最初であり、次いで症例2、三浦等の例が報告され、我々の症例3を加えて4例に過ぎない。臨床診断の詳細は表5の如くであり、16例中7例は所謂特発性腎出血と診断されている。

この点に関して、Dukes¹³⁾は特発性腎出血の一般的な原因として最も血管腫を重要視している。即ち彼は特発性腎出血と診断された9例に手術を行い、そのうち3例に腎乳頭血管腫を認め、血管腫は所謂特発性腎出血の最も普通の原因の1つであるとさへいつている。また

Burgess⁵⁾は所謂無症候性血尿患者 100例を集め、出血の原因が腎にあると考えられる35例中1例に於て、腎乳頭の血管腫をみている。一方仁平²¹⁾は特発性腎出血と診断され、各種の保存療法を行うも止血に至らざるため、遂に腎切除術を施行した12例について、剔除腎の病理組織学的検索を行い、その1例に腎乳頭血管腫をみている。

このように所謂特発性腎出血と診断されたもののなかには、更に注意深く検索すればかなりの血管腫がみられるものと想像され、その際本症の診断には腎動脈撮影が最も有力な手掛りである。その血管像は前述の如く、腎動脈枝の蛇行、拡張等で pooling 乃至 puddling のようにみえるが、腎腫瘍のそれよりも一般に限局しているようである。併し、時には腎腫瘍の血管像と区別し難いこともある。Nephrogram の上では略均等な像であり、腎盂腎杯像にも著変はないし、腫瘍のそれとはかなり異なるようである²⁸⁾。また、本症では腫瘍のように欠損像を示さないで、レノシンチグラムも良き参考になる(症例2, 図12参照)。

今後の問題としては、本症が術前に、確実に診断されるようになることで、そのためには表6にあげた事項が重要である。

表6 診断及び鑑別診断

1. 年 令
2. 合併症
3. 血尿の期間
4. 尿 Papanicolaou 氏検査
5. 腎盂レ線像
6. 腎動脈レ線像
7. レノシンチグラム

即ち皮膚その他に血管腫を有するか否かを調べることは、本症における診断的意義が大である。併し、本邦では我々の症例1に下肢の皮膚血管拡張及び痔核をみている以外報告はない。一般に長期に亘る血尿があつて、腎盂レ線像に変化がないか、あるいはあつたとしても微細な変化を認めるにすぎない時は、本症を疑つて腎動脈撮影を行うべきである。そうすれば我々の経験例よりみても、従来いわれていた程本症の診断は困難ではないと信ずる。しかしその際年令、尿 Papanicolaou 氏検査成績等をも参考にして、早期の腎悪性腫瘍とまちがわぬように注意しなければならない。

10. 治療

治療法としては、片側性である限り腎切除術がよいとされ、本邦では臨床16例すべてに行なわれている。しか

し一侧腎を剔除した後、他側の健全と思われた腎から出血することがあるから、腎別に当つては他側腎を十分に検査する必要がある。また欧米では少数例に腎部分切除、乳頭切除、腎杯切除等が行なわれているが、病巣が十分に排除できず再出血の可能性のあること、及び術中に悪性腫瘍と鑑別をすることが困難である等の理由から、これに反対するものがある²²⁾⁴²⁾⁴⁹⁾。しかし腎動脈撮影等により、病巣の部位が確実に診断され、その範囲が限局性で小さい場合、且つ悪性腫瘍との鑑別が十分に出来た場合には、部分切除がよいであろう。

その他の治療法としてはレ線照射を行つた Paletz and Sewell³⁴⁾ の例がある。彼等は多発性血管腫を有する右腎を剔除した後、70日にして左残腎出血を確認し、血管腫の存在による血尿と診断し、初めて本疾患にレ線照射を試みた。前後両方向から各 200γづつ連続2日間(腎における推定蓄積線量は約 435γ)照射して経過をみたところ、照射後32日目に突然血尿は止り、その後4年間全く再発を起さなかつたといつている。しかしかかる照射線量で血管腫が破壊吸収されるとは考え難く、何か他の機転によつて、あるいは偶然に止血したものと思われる。何れにせよ、Wallach 等⁴⁴⁾のいう如く、良性の血管性腫瘍に対する放射線療法の価値は明らかであるから、腎実質を保存するために、腎血管腫に対する放射線療法は今後試みられ、検討されるべきであろう。

IV 結 語

1. 腎動脈撮影等により、術前に腎血管腫と診断し得た3例について報告した。

症例1は38才の家婦で、10年前より間歇的且つ強度の血尿があり、両下肢の皮膚血管の拡張及び痔核を合併していた。症例2は64才の男子で、4年半の間歇期をもつて再出血し、症例3は27才の女子で、5年間に8回の血尿があつた。

腎盂レ線像は症例1に腎盂・腎杯の延長、症例2に中腎杯の変形をみたが、症例3には著変を認めなかつた。

腎動脈撮影では、3例とも病巣部に一致して血管の蛇行、拡張、puddling 乃至 pooling 像を認め、術前臨床的に腎血管腫と診断し得た。

治療としては何れも腎切除術を行い、病理組織学的にも腎血管腫と診断された。

2. 自験例3例を含めて本邦症例18例を集め、本疾患について統計的観察及び考案を行つた。

なお、本症を術前臨床的に診断するためには腎動脈撮影が最も重要であり、それとともに腎盂レ線像、レノシ

ンチグラム, 年齢, 血尿の期間及び性質尿, Papanicolaou 氏検査等の成績を併せ考えれば, 従来いわれていた程困難ではないと信ずる。

また治療法としては, 本邦の臨床16例すべてに腎別除術が行なわれているが, 術前診断の確立とともに, 今後腎部分除術或いは放射線療法が検討されるべきであろう。

(症例1は第277回, 症例2は第292回, 症例3は第296回の日本泌尿器科学会東京地方会に於て, 夫々その要旨を発表した。

文 献

- 1) 阿部定蔵: 日泌尿会誌, 43, 119, 昭27.
- 2) Anderson, J.B., et al.: J. Urol., 70, 869, 1953.
- 3) 馬場弘二郎, 阿曾佳郎: 日泌尿会誌, 52, 347, 昭36.
- 4) Bell, E.T.: J. Urol., 39, 238, 1938.
- 5) Burgess, H.: Brit. Med. J., 1, 787, 1922.
- 6) Butt, A.J. & Perry, J.Q.: J. Urol., 65, 15, 1951.
- 7) Cid and Ercole: 土屋文雄, 日東寺浩: 手術, 11, 104, 昭和32より引用.
- 8) Cirio, G.: Riforma med., 49, 598, 1933.
- 9) Dalakopoulos, N.: Z. Urol., 31, 458, 1937.
- 10) Dean, A.L. & MacCarthy, W.D.: Trans. Am. Assoc. Genito-Urinary Surg., 33, 1, 1940.
- 11) 土井羊吉, 古河昭司: 泌尿紀要, 3, 346, 1957.
- 12) Dorman, H.N. & Fowler, H.A.: J. Urol., 55, 348, 1946.
- 13) Dukes, C.: Trans. Med. Soc., London, 65, 391, 1948.
- 14) Fenwick, E.H.: Clinical Cystoscopy, London, 392, 1904.
- 15) Ferguson, C. et al.: J. Urol., 74, 591, 1955.
- 16) Hansen, F.H.: Z. Urol., 52, 37, 1959.
- 17) Henke, F. & Lubarsch, O.: Handbuch der speziellen pathologischen Anatomie und Histologie, Berlin: Julius Springer, 1925.
- 18) Herbut, P.A.: Urological Pathology, 408, 1952.
- 19) Hüchel, R.: Dtsche. Z. Chir., 201, 190, 1927.
- 20) 福田勝治: 日本病理会誌, 1, 121, 1911.
- 21) Judd, E.S. & Simon, H.E.: Surg. Gynec. Obst., 46, 711, 1928.
- 22) 黒田和夫: 日泌尿会誌, 40, 89, 1949.
- 23) MacKey, W.A.: Brit. J. Surg., 18, 308, 1930.
- 24) Malashock, E.M. & Kopp, H.J.: J. Urol., 72, 783, 1954.
- 25) Marks, M.S. & Lazarus, J.A.: Urol. & Cutan. Rev., 51, 500, 1947.
- 26) McCrea, L.E.: Urol. & Cutan. Rev., 55, 670, 1951.
- 27) Melicow, M.M.: J. Urol., 51, 333, 1944.
- 28) 南武, 千野一郎: 総合臨床, 15, 420, 昭41.
- 29) 三浦耕也, 宮村隆三: 日泌尿会誌, 57, 113, 昭41.
- 30) Nation, E.F. et al.: J. Urol., 68, 74, 1952.
- 31) 仁平寛治: 泌尿紀要, 4, 494, 昭33.
- 32) 大越富彌: 皮と泌, 16, 130, 昭29.
- 33) 大野武司: 皮泌誌, 23, 812, 大12.
- 34) Paletz, B.E. & Sewell, G.: J. Urol., 65, 9, 1951.
- 35) Rappoport, A.E.: Arch. Path., 40, 84, 1945.
- 36) Rattino, A. & Mohan, H.: J. Urol., 51, 601, 1944.
- 37) Riley, A. & Swann, W.J.: Urol. & Cutan. Rev., 45, 377, 1941.
- 38) Szecey von G. & Flesch, A.: Z. Urol., 27, 866, 1933.
- 39) 竹内弘幸他: 日泌尿会誌, 56, 768, 昭40.
- 40) 田中弘他: 日泌尿会誌, 46, 593, 昭30.
- 41) 蔡衍欽他: 臨床皮泌, 20, 705, 昭41.
- 42) 土屋文雄, 日東寺浩: 手術, 11, 104, 昭32.
- 43) Virchow: Cited by Swann, R.H.J. & Balme, H., Brit. J. Surg., 23, 282, 1935.
- 44) Wallach, J.B., et al.: J. Urol., 81, 515, 1959.
- 45) Waller, J.I., et al.: J. Urol., 74, 186, 1955.
- 46) Weyrauch, H.M. & Berger, M.M.: Stanford Med. Bull., 9, 43, 1951.
- 47) Wheeland, R.: Urol. & Cutan. Rev. 56, 76, 1952.
- 48) Wheeler, W.C.: Surg. Gynec. Obst., 38, 143, 1924.
- 49) White, E.W. & Braunstein, L.E.: J. Urol., 56, 183, 1946.
- 50) 山口武津雄: 泌尿紀要, 8, 618, 昭37.

(昭和42年5月16日受付)