症例報告

多発する腎嚢胞感染に対し両側腎摘除術を行った 多発性嚢胞腎の1例

加藤 大貴¹ 松本 力哉¹ 水野 卓爾¹ 深澤 洋敬²
古谷 隆一²

¹磐田市立総合病院泌尿器科 ²磐田市立総合病院腎臓内科

キーワード：多発性嚢胞腎，腎嚢胞感染，MRI 拡散強調画像，apparent diffusion coefficient map (ADC map)，
両側腎摘除術

〈要旨〉

症例は65歳男性。多発性嚢胞腎，血液透析中で61歳時に他院で両側腎動脈塞栓術を施行された。その後，肝腎嚢胞感染を繰り返し抗菌療法で軽快した。今回発熱，腹痛，意識障害で当院に初診。嚢胞感染による敗血症を疑ったが，腹部造影CTで明らかな感染源を特定できなかった。MRI 拡散強調画像 (diffusion weighted image : DWI) で高信号，apparent diffusion coefficient map (ADC map) で低信号を呈する嚢胞が両側腎に複数認められ，これらが感染源と考えられた。ニューキノロン系抗菌薬投与を行ったが反応は不良で，第7病日に両側腎摘除術を施行した。術後速やかに炎症反応は軽快した。

A case of polycystic kidney disease with multiple cysts infection treated by bilateral nephrectomy

Taiki Kato¹, Rikiya Matsumoto¹, Takuji Mizuno¹, Hirotaka Fukasawa², Ryuichi Furuya²

¹Department of Urology, Iwata City Hospital

²Renal Division, Department of Internal Medicine, Iwata City Hospital

Key words : polycystic kidney disease, renal cyst infection, diffusion-weighted magnetic resonance imaging (DWI-MRI), apparent diffusion coefficient map (ADC map), bilateral nephrectomy

〈Abstract〉

Cyst infection is a frequent and adverse complication of polycystic kidney disease (PCKD) and sometimes results in a fatal outcome. The diagnosis and treatment of cyst infection are often difficult. We report a PCKD patient with multiple cyst infection treated by bilateral nephrectomy. A 65-year-old male hemodialysis patient with PCKD was transferred to our hospital because of high fever and abdominal pain. The laboratory findings revealed leukocytosis and high CRP level. Contrast-enhanced abdominal CT scan showed multiple hepatic and renal cysts ; however, it could not distinguish infected lesion accurately. Diffusion-weighted magnetic resonance imaging (DWI-MRI) showed high signal intensity and apparent diffusion coefficient map (ADC map) showed low signal intensity in several cysts on both kidneys. Furthermore, fluid-fluid levels were detected in some cysts. Taking the symptoms, laboratory findings, and MRI features together, we diagnosed him with bilateral multiple renal cysts infection. Treatment was started with intravenous levofloxacin administration, but his general condition deteriorated gradually. Bilateral nephrectomy was performed on the seventh hospital day, and his general condition improved thereafter. This case suggests the usefulness of DWI-MRI and ADC map in the diagnosis of cyst infection. Early surgical intervention should be considered in some cases.

緒 言

抗菌療法に抵抗性の腎嚢胞感染に対しては、ドレナージを含め外科的治療が必要となる。しかし、多発性嚢胞腎 (polycystic kidney disease: PCKD) に嚢胞感染が合併した場合、責任病変の同定が難しいことが多い。今回われわれは腎嚢胞感染を繰り返した症例に対し、MRI 拡散強調画像 (diffusion weighted image: DWI) と apparent diffusion coefficient map (ADC map) で両側腎嚢胞の嚢胞感染を同定し、早期に両側腎摘除術を行い救命し得た1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

I. 症 例

患者：65歳、男性。

主訴：発熱、腹痛、頸部痛。

既往歴：心房細動、適応障害。

家族歴：父親 常染色体優性多発性嚢胞腎 (autosomal dominant polycystic kidney disease: ADPKD)。

常用薬：トリアゾラム、エチゾラム、ラメルテオン、ラベプラゾールナトリウム。

現病歴：1974年(26歳)ADPKDと診断され、2003年(52歳)他院で血液透析導入となった。2010年(61歳)両側腎腫大による腹部膨満感に対し、他院にて両側腎動脈塞栓術(transcatheter arterial embolization: TAE)を施行された。その後、2010年に肝嚢胞感染、2011年に腎嚢胞感染に罹患し、他院にていずれも抗菌療法で軽快した。2013年5月に38℃の発熱、腹痛、頸

部痛が出現し、近医で点滴抗菌療法を受けたが軽快せず、4日後に意識障害を伴い当院へ紹介初診となった。

初診時現症：意識レベルJCS I-3。体温38.2℃、血圧105/73 mmHg、心拍数109回/分 不整、SpO₂ 93% (room air)。身長170 cm、体重61.0 kg、BMI 21.1、腹部は全体的に緊満し、全体に圧痛と反跳痛を認めた。

血液検査では白血球、CRP、プロカルシトニンの上昇が認められた(表1)。胸腹部造影CTでは多発する肝腎嚢胞を認め、両側腎嚢胞の一部に石灰化と濃度上昇がみられたが感染源を特定できなかった。腹部単純MRIでは両側腎嚢胞の複数の嚢胞にDWIで高信号、ADC mapで低信号、液面形成を認めた(図1)。

入院後経過：発熱、炎症反応の著明な上昇と画像所見より両側腎嚢胞感染と診断し、腎臓内科でレボフロキサシン250 mg/日、ガベキサートメシル酸塩、グロブリンで治療が開始された。しかし、腹痛、発熱、炎症反応の改善が認められなかったため第4病日に当科に紹介された。両側腎の複数の嚢胞に感染を認め、中にはサイズの小さい嚢胞感染も含まれ、経皮的ドレナージは困難で治療が不十分になる可能性があるかと判断し、第7病日に両側腎摘除術を施行した。

手術所見：全身麻酔下に経腹的両側腎摘除術を施行した。両側腎とも周囲組織と強固に癒着しており、鈍的鋭的に剥離し摘除した。腓被膜を一部損傷したが実質損傷はなく、両側腎床部、腓尾部にドレーンを計3本留置し手術を終了した。術中1,750 mLの淡黄色の腹水を認めたが細胞診、培養ともに陰性であった。

摘出標本：右腎1.8 kg、左腎1.7 kgで感染源と考えられる白濁した嚢胞が両側腎にみられた。

病理学組織学的所見：両側腎のいくつかの嚢胞壁に

表 1 Laboratory data on admission

血液		BUN (mg/dL)	50	動脈血液ガス	
WBC (/μL)	6,900	Cre (mg/dL)	8.8	pH	7.464
neutro (%)	85.4	CPK (IU/L)	17	PaO ₂ (mmHg)	54.6
mono (%)	8.9	Na (mEq/L)	134	PaCO ₂ (mmHg)	33.7
eosino (%)	0.6	K (mEq/L)	5	HCO ₃ ⁻ (mEq/L)	23.6
lymph (%)	5	Cl (mEq/L)	98	BE (mmol/L)	0.4
RBC (/μL)	409×10 ⁴	Ca (mg/dL)	9.2	Lac (mg/dL)	10.6
Hb (g/dL)	11.1	P (mg/dL)	3.6		
Ht (%)	34	BS (mg/dL)	73	血液培養	陰性
PLT (/μL)	7.6×10 ⁴	CRP (mg/dL)	27.7		
生化学		プロカルシトニン (ng/mL)	134.7		
TP (g/dL)	6.5	BNP (pg/mL)	782.7		
Alb (g/dL)	2.8	凝固系			
T-Bil (mg/dL)	0.8	Fib (mg/dL)	588		
ALP (IU/L)	359	PT (%)	11.6		
AST (IU/L)	13	APTT (%)	46		
ALT (IU/L)	7	PT-INR	1.81		
LDH (IU/L)	188	D-dimer (μg/mL)	13.4

図 1 Contrast enhanced abdominal CT scan (A) and MRI findings (T2WI (B), DWI (C) and ADC map (D)). CT scan showed no identifiable source of bleeding or infection and showed strong artifacts by many coils from TAE. The infected kidney cysts were exposed as low intensity on T2WI, high intensity on DWI and low intensity on ADC map differing from normal cysts (arrow). A fluid-fluid level could be seen (arrow head).

図 2 Clinical course

好中球，形質細胞など炎症細胞浸潤と壊死がみられ，PCKDに伴う化膿性炎症と診断された。

術後経過：術後速やかに炎症反応の改善がみられ，順次ドレーンを抜去し第51病日に退院となった（図2）。現在術後1年9か月が経過するが，術後合併症なく経過している。

II. 考 察

ADPKDの頻度は本邦では約4,000人に1人と推定

され¹⁾，2013年の日本透析医学会の調査では透析患者のうち3.5%（10,654人）はADPKDと報告されている。ADPKDの患者の30～50%が生涯のうちに嚢胞感染症を経験し²⁾，またADPKDによる入院患者全体の11%を占めるという報告がある³⁾。Fickら⁴⁾は129例のADPKD患者のうち9人（約6%）が肝腎嚢胞感染で死亡し，諏訪部ら⁵⁾は嚢胞感染症で入院治療を行ったADPKD患者284人のうち26人（9%）が死亡したと報告しており，嚢胞感染症は重篤な合併症のひとつである。

腎嚢胞感染の症状は突然の高熱、感染した嚢胞に限局した腹痛が特徴であり、血行性あるいは尿路からの逆行性に生じると考えられている。起因菌として腸管由来のグラム陰性桿菌が多く、脂溶性で嚢胞透過性良好なニューキノロン系抗菌薬が治療に推奨される⁶⁾。抗菌療法に抵抗性の場合には経皮的ドレナージが施行されるが、ドレナージ後も治療抵抗性の場合やTAE後に嚢胞感染の再発を繰り返す場合には腎摘除術など外科的切除が考慮される⁵⁾。ドレナージを行うために責任病変を同定する必要があるが、超音波検査、CTでは通常嚢胞や嚢胞出血との鑑別が困難であり^{3,7,8)}、MRI-DWIが診断に有用であるとの報告がある^{3,8~10)}。MRI-DWIは水分子の動きを画像化する方法で、膿瘍など粘稠度の高い液体が存在する場合では、水分子の動きは制限されみかけの拡散係数が低下しADC mapで低信号、DWIでは高信号を呈する。Suwabeら⁹⁾は、臨床所見と検査所見、CT、MRI画像所見を用いて嚢胞感染症と嚢胞出血の診断基準を提唱している。それに従えば、本症例はCTで嚢胞出血の所見を認めず、38℃以上の発熱、WBC高値、CRP高値を認め、MRI-DWIで両側腎嚢胞の複数に高信号、嚢胞内ニボー像を呈し、腹部全体に腹痛と圧痛を認め、両側腎嚢胞感染と診断される。感染嚢胞の局在診断にはMRI-DWIとADC mapが有用であるが、近年海外からは¹⁸F-fluorodeoxyglucose (¹⁸FDG) positron-emission computed tomography (PET/CT)がMRI拡散強調画像より嚢胞感染の局在診断に優れるという報告がある^{3,7,10)}。しかし、本邦では保険適応がなく、また検査費用が高価であり実施可能な施設が限られているため現段階で一般診療での使用は実用的ではない。

Suwabeら¹¹⁾は、腎TAEにより、腎容積は減少し、栄養状態が改善するため嚢胞感染症の再発が少ないことを示している。本症例は無尿で尿路感染を認めなかったためおそらく血行性に嚢胞感染を起こしたと考えられる。腎TAEにより腎血流を遮断することで血行性感染が起きにくくなると考えられるが、塞栓性が完全ではなく腎TAE後にも腎血流が残存している場合には本症例のように血行性感染を起こす可能性がある。

結 語

本症例は抗菌療法に抵抗し、重篤化した両側の腎臓に多発する腎嚢胞感染症に対して両側腎摘出術を行った1例である。ADPKDの嚢胞感染の診断は容易では

ない場合が多いが、画像所見(MRI-DWI, ADC mapなど)、臨床所見により早期に診断を行い、適切な抗菌療法を開始することが基本である。しかし、治療に抵抗する場合には早期に外科的治療も検討すべきであると考えられた。

本論文の要旨は第266回日本泌尿器科東海地方会にて発表した。

文献

- 1) Higashihara E, Nutahara K, Kojima M, et al. Prevalence and renal prognosis of diagnosed autosomal dominant polycystic kidney disease in Japan. *Nephron* 1998; 80: 421-7.
- 2) Alam A, Perrone RD. Managing cyst infections in ADPKD: an old problem looking for new answers. *Clin J Am Soc Nephrol* 2009; 4: 1154-5.
- 3) Sallee M, Rafat C, Zahar JR, et al. Cyst infections in patients with autosomal dominant polycystic kidney disease. *Clin J Am Soc Nephrol* 2009; 4: 1183-9.
- 4) Fick GM, Johnson AM, Hammond WS, Gabow PA. Causes of death in autosomal dominant polycystic kidney disease. *J Am Soc Nephrol* 1995; 5: 2048-56.
- 5) 諏訪部達也, 乳原善文, 高市憲明, 荒岡秀樹. 常染色体優性多発性嚢胞腎(ADPKD)に伴う嚢胞感染症. *腎と透析* 2014; 76: 405-14.
- 6) エビデンスに基づく多発性嚢胞腎診療ガイドライン 2014. *日腎会誌* 2014; 56: 1105-87.
- 7) Jouret F, Lhommel R, Beguin C, et al. Positron-emission computed tomography in cyst infection diagnosis in patients with autosomal dominant polycystic kidney disease. *Clin J Am Soc Nephrol* 2011; 6: 1644-50.
- 8) 加藤秀一, 堀田裕, 峯田昌之, 三宅正文. MRI拡散強調画像が診断に有用であった多発性嚢胞腎に合併した感染性嚢胞の1例. *日泌尿会誌* 2014; 104: 536-9.
- 9) Suwabe T, Ubara Y, Sumida K, et al. Clinical features of cyst infection and hemorrhage in ADPKD: new diagnostic criteria. *Clin Exp Nephrol* 2012; 16: 892-902.
- 10) Balbo BEP, Sapienza MT, Ono CR, et al. Cyst infection in hospital-admitted autosomal dominant polycystic kidney disease patients is predominantly multifocal and associated with kidney and liver volume. *Braz J Med Biol Res* 2014; 47: 584-93.
- 11) Suwabe T, Ubara Y, Higa Y, et al. Infected hepatic and renal cysts: differential impact on outcome in autosomal dominant polycystic kidney disease. *Nephron Clin Prac* 2009; 112: c157-63.