多嚢胞化萎縮腎 (acquired cystic renal disease) の破裂により ショック状態となった血液透析患者の検討

盛田 修一郎 王 幸 則 柳 瀬 哲 郎 三井島 千秋
鶴 田 宏 藤 見 惺
福岡赤十字病院・腎センター

(平成1年3月8日受付)

key words : acquired renal cyst, rupture, hemodialysis

〈要旨〉

多嚢胞化萎縮腎の破裂でショック状態となった維持血液透析患者3症例を報告する。3例に共通するものとして、透析歴が7年以上の長期透析患者であること、発症が透析終了後比較的短時間であること、突然の側腹部痛で発症し血尿等もなかったこと、血圧の低下と貧血の進行、血清Kの上昇が見られたこと、更に3例何れも腎癌の合併もなく保存的療法にて軽快したことがあげられる。多嚢胞化萎縮腎の破裂の危険因子としては腎癌の合併、非透析時の抗凝固剤の使用、尿路結石の存在、嚢胞内感染等が指摘されている。2例には高血圧があり、透析時に比較的多量のヘパリンを使用していたが、他の1例では特別危険因子としてあげられるものは明らかでなかった。長期透析患者では、常に多嚢胞化萎縮腎が破裂する危険性があり、今後重篤な合併症の一つとして充分認識しておかなければならないと思われる。

Rupture of acquired renal cysts in three longterm hemodialysis patients

Shuichiro Morita, M. D., Yukinori Oh, M. D., Tetsuro Yanase, M. D., Chiaki Miishima, M. D., Hiroshi Tsuruta, M. D., Satoru Fujimi, M. D.

Department of Internal Medicine, Fukuoka Red Cross Hospital

Acquired cystic renal disease in the contracted kidney of long-term dialysis patients has been considered to lead to tumor formation. In addition, although not much attention has been paid to it, rupture of the cysts leading to hemorrhagic shock can be another serious problem. We report 3 such patients seen during the past 6 years. They all had been receiving hemodialysis for over 7 years and showed acute onset of severe flank pain a few hours after hemodialysis therapy. Hypotension, progressive anemia and hyperkalemia were consistently seen but not gross hematuria. In 2 patients uncontrolled hypertension was considered a possible contributing factor, but this was not seen in the other patient. There was no other evidence of probable risk factors, such as renal malignant lesion, off-dialysis anticoagulation, urolithiasis or intra-cystic infection, in any patient. All patients recovered from the initial catastrophes with conservative management but required emergency dialysis for control of hyperkalemia. In managing long-term hemodialysis patients, this relatively unknown complication should be kept in mind.

はじめに

長期透析患者に見られる多嚢胞化萎縮腎は、悪性腫瘍の発生との関連 (malignant potential) で注目されているが、出血や感染等嚢胞性疾患一般に特徴づけられる合併症も問題となり得る。我々はこれまでに、多嚢胞化萎縮腎の破裂によって腎内及び腎周囲に出血してショック

状態となった症例を3例経験した。いずれの場合も、このような病態を惹き起こすとされる特別な背景因子を欠き、悪性腫瘍の合併も認められなかった。これまでこのような症例についての報告は少なく、その実態については不明な点が多い。

症例1

患者：54歳、女性

主訴：激烈な左側腹部痛

盛田修一郎 福岡赤十字病院・腎センター

〒815 福岡市南区楠3-1-1 (092-521-1211)

既往歴：気管支喘息，卵巣嚢腫

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：昭和50年，慢性糸球体腎炎を原疾患とする末期腎不全により血液透析に導入された。昭和59年二次性副甲状腺腫に対して副甲状腺摘出術を受けた以外は，安定した慢性血液透析患者としての生活を送っていた。昭和62年10月20日，血液透析終了約40分後，帰宅途中，突然に左側腹部痛が出現した。疼痛は次第に増強し，帰宅時には意識もはっきりしない程度になったため，当科へ緊急入院した。

入院時現症：意識は傾眠状態で，血圧 84/60 mmHg，脈拍 80/分・整，体温 36.4°C。眼瞼結膜に強い貧血を認めたが黄疸は認めなかった。胸部は異常なく，腹部では左側腹部から背部にかけて強い圧痛と筋性防御が認められたが，腫瘍は触知されなかった。神経学的には，意識はやや低下しているものの深部反射の亢進や病的反射の出現等は認めなかった。

入院時検査所見：RBC 236×10^4 ，Ht 21%，WBC 6300，血清総蛋白，6.5 g/dl，GOT 56 U，GPT 12 U，AIP 4.8 U，LDH 331 U，T. Chol 179 mg/dl，血清アミラーゼ 312 IU，BUN 24 mg/dl，Cr 7.0 mg/dl，Na 138.6 mEq/l，Cl 106 mEq/l，K 6.2 mEq/l，P 3.8 mg/l，Ca 5.1 mEq/l，UA 2.8 mg/l，CRP (+)，便潜血 (-)

経過：病歴，現症より出血性ショックの診断で直ちに輸液，濃厚赤血球の輸血を開始し，左側腹痛に対し非麻薬性鎮痛剤の投与を行い，緊急に腹部CTスキャンを撮影した。図1に示したように腎の嚢胞内と被膜下の血腫のために著明に腫大した左腎が認められ，多嚢胞化萎縮腎の破裂と診断した。血腫は腎被膜より後腹膜まで広がっており，腎結石と思われる石灰化像も認められた。右腎は多嚢胞化萎縮腎の所見を呈し内部に腎結石が認められた（図1）。

第2病日には腹部緊満感を訴えるだけとなり血圧，Htも改善した（それぞれ 130/70 mmHg 24%）。当初，血液透析はFOYを使用して行ったが，第17病日以降はヘパリンによる通常透析を行い，以後腹部症状も軽減消失した。図2にCT所見の経過を示すが，血腫は次第に吸収され左腎も縮小した。以後，現在まで再出血はなく，腎癌を示唆する所見も認められていない（図2）。

症例2

患者：45歳，男性

主訴：右側腹部痛

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：昭和51年1月，慢性糸球体腎炎による末期腎不全の診断で腹膜灌流を開始され，昭和51年2月に血液透析に導入された。以後，透析間の体重増加が多く血圧

図1 入院時腹部CT

左腎において，腎嚢胞は拡張し背側部より被膜下にかけて血腫が存在し著明に腫大している

のコントロールが不十分であったが，全般には安定した状態で外来透析を受けていた。昭和57年12月28日，午前5時頃（透析終了後約7時間），自宅で就寝中に，右側腹痛で覚醒した。悪心嘔吐も出現したため近医を受診し，右側腹部の膨隆と血圧の低下（日頃 180/110 mmHg が受診時 130/90 mmHg）を指摘された。翌29日にはHt.低下（受診時 38%から 30%）と高K血症（7.1 mEq/l）が見られ，当科へ緊急入院した。

入院時現症：意識は清明で，血圧 120/80 mmHg，脈拍，104/分・整，体温 36.4°Cであった。眼瞼結膜に強い貧血を認め，筋性防御を伴う右側腹部痛と膨隆を認めた。

入院時検査所見：RBC 282×10^4 ，Ht 26%，WBC 9500，BUN 49 mg/dl，Cr 12.1 mg/dl，Na 137 mEq/l，K 7.4 mEq/l，便潜血 (-)

経過：腹部超音波を含む検査所見により後腹膜血腫と診断し，輸血，さらに高K血症に対しFOYを使用しての血液透析を施行した。第5病日には右側腹部痛が消失し貧血の進行もなくなり第6病日からは少量のヘパリンを使用しての血液透析をおこなった。腹部CTスキャンの所見より右腎の多嚢胞化萎縮腎の破裂による後腹膜血腫と診断した。以後，再出血はなく腎癌の合併を示唆する所見もない。

症例3

患者：68歳，男性

主訴：右側腹部痛及び右下腹部痛

既往歴：陳旧性肺結核，急性肝炎

家族歴：父：腎不全，母：胃癌

現病歴：昭和26年頃より高血圧があり，昭和40年以後は蛋白尿が持続していたが，昭和50年10月眼底出血と腎機能低下が認められた。以後高血圧とともに腎機能は進行的に低下し，昭和53年10月2日腹膜灌流が開始され，同年11月13日血液透析に導入された。以後高血

A. 発症約2か月後

B. 発症約5か月後

図2 腫大した左腎は縮小している

図3 破裂した右腎組織(剖検腎)

被膜下に器質化した血腫と拡張した大小の尿細管が見られる。一部増殖した尿細管上皮が見られるが癌細胞は認めなかった(H.E.染色)

周囲の血腫は縮小していた。しかしながら出血性肛門裂傷を合併したため下血による貧血が持続し、次等に全身状態が悪化して第48病日死亡した。剖検所見では右腎の被膜下に広範囲に血腫があり、実質側では器質化し拡張した尿細管と萎縮した尿細管が混在し、間質は慢性炎症細胞浸潤を伴う繊維化を見られた。癌細胞は発見できなかった(図3)。

考察

1977年 Dunnill ら¹⁾が血液透析患者の腎臓に多発性嚢胞や腫瘍が発生することを報告して以来、数多くの報告²⁻⁶⁾によりそれが裏づけされている。これまでの報告によると、維持透析患者に27~47%に腎の多発性嚢胞(acquired renal cystic disease)が認められ^{1,3,4,7,10)}、さらにこのことと関連して長期透析患者の9%に腎癌が合併するとされている^{9,10)}。したがって、多嚢胞化萎縮腎のある維持透析患者の場合、特に血尿や嚢胞破裂の徴候があれば、まず悪性腫瘍の合併を第一に考えねばならない。

一方、突発的に後腹膜出血を来した症例で悪性腫瘍の合併のないものについての報告も散見される¹¹⁻¹⁴⁾。本稿で呈示した3例も、過去6年間に我々の施設で経験した類似の症例である。表1に示したが、まとめてみると以下の如き臨床的特徴を有していた；1)透析歴が7年以上の長期透析患者であること、2)血液透析終了後比較的短時間で発症していること、3)特別誘因となるものなく突然腹痛で発症して、血圧低下、貧血の進行、高カリウム血症の認められたこと、4)肉眼的血尿は見られなかったこと、5)多くの場合保存的療法のみで軽快すると考えられること。

透析歴に関しては、多嚢胞化萎縮腎の発生頻度が透析4年以上で約80%であるとされていることから¹⁵⁾、3例とも長期にわたって多嚢胞化萎縮腎を有していたものと

圧以外問題なく経過していたが、昭和60年12月18日透析終了約1時間後、急に右側腹部痛ならびに右下腹部痛が出現した。腹痛は次第に増強し翌19日当科へ入院した。

入院時現症：意識は清明、血圧110/60 mmHg、脈拍72/分・整、体温36.9°C。眼瞼結膜に貧血を認めた。胸部に異常なく、腹部では腫瘍は認めないが右側腰背部と下腹部に圧痛を認めた。神経学的に異常は認めなかった。

入院時検査成績：RBC 411×10^4 、Ht 31.3%、WBC 4800、Plt. 20.7×10^4 、血清総蛋白、7.0 g/dL、GOT 44 U、GPT 34 U、LDH 218 U、BUN 33.6 mg/dL、Cr 8.9 mg/dL、Na 140 mEq/L、Cl 107 mEq/L、K 5.5 mEq/L、Bleeding time : 1 min、Coagulation time : 11 min、Fibrinogen : 211 mg/dL、PT 17.2 sec、APTT 42.1 sec、CRP (±)、便潜血 (-)

経過：入院4時間後の腹部CTスキャンで右腎の多嚢胞化萎縮腎と同部の血腫形成を認めた。ただちに、輸液・輸血とtranexamic acidの投与を行った。第2病日より腹膜灌流を行い、第10病日よりFOYを使用しての血液透析を再開した。第20病日の腹部CTでは右腎内及び

表 1

症 例	第 1 例	第 2 例	第 3 例
年齢	54 歳	45 歳	68 歳
性	女	男	男
原疾患	CGN	CGN	HTNS
透析歴	12 年	7 年	7 年
推定発症時間 (HD 後時間)	40 分	7 時間	1 時間
ヘパリン量	4,200 U	10,000 U	13,000 U
血圧変化 (mmHg)	120/70 → 84/64	180/110 → 130/90	170/110 → 110/60
Ht 変化 (%)	22.5 → 21	38 → 26	36 → 24
K (mEq/l)	6.2	7.4	5.5

* ヘパリン量：発症直前の HD 時の総ヘパリン量 * HTNS：高血圧性腎硬化症

想定される。また、発症時の状況から推察すると、血液透析操作に関わるなんらかの要因が直接あるいは間接的に関与した可能性も否定できない。すなわち、体外循環操作に伴う少なからぬ循環動態の変動や、ヘパリンの使用に伴う易出血性の関与等については、特に気にかかるところである。臨床的には大量出血を示唆する血圧低下や貧血の進行が特徴的であるが、その他高カリウム血症もあり体内溶血の機序の関与も否定できない。高カリウム血症があれば、出血中であっても緊急透析で対処しなければならない場合も想定され、治療上大きな問題となりうる。症候学的には急性発症の側腹部激痛は嚢胞破裂による腎出血と血腫の後腹膜への拡大を意味し、早期診断上重要な手がかりとなる。

多嚢胞化萎縮腎で悪性腫瘍を伴わない場合、シャント閉塞予防のための抗凝固剤投与¹²⁾、尿路結石に続いて起こる上部尿路内圧上昇^{12,13)}、尿路感染に続発した腎嚢胞感染¹³⁾等の要因が risk factor としてあげられている。我々の経験した 3 例には上述したような発症前の誘因は明らかではなかった。強いてあげれば症例 2 と症例 3 で透析に使用したヘパリン量が比較的多量であったことが考えられる。しかしながら他の一例にはそのような誘因も明らかでなかった。

多嚢胞化萎縮腎に合併する嚢胞内出血の成因の詳細については、なお不明な点が少なくないが、多くの場合緊急に救命措置を要するものとして捉えなければならない病態であると判断される。我々の経験した 3 例は、過去の報告例^{11~14)}と同様に、保存的療法と少量のヘパリンや FOY を用いた血液透析により血腫は吸収されたが、当然のことながら外科的に対処しなければならない場合も少なくないものと思われる。本病態の概念を認識した上で、早期診断による早期治療を心がけることが大切であろう。また、このような症例では、常に悪性腫瘍の合併を

念頭において対処すべきで、我々の症例でも更に詳細な検索と綿密な経過観察が必要であろうと思われる。

まとめ

我々の施設において経験した長期血液透析患者で、多嚢胞化萎縮腎の破裂により重篤な状態に陥った 3 例を報告した。維持透析患者の長期生存例の増加してきている状況下、重篤な合併症の一つとして広く認識されるべき病態であると考えられる。

文献

- 1) Dunnill MS, Millard PR, Oliver D : Acquired cystic disease of kidneys : A hazard of longterm intermittent maintenance haemodialysis. J Clin Pathol 30 : 868-877, 1977
- 2) Elliot HL, MacDougall AI, Buchanan WM : Acquired cystic disease of kidney. Lancet ii : 1359, 1977
- 3) Bommer J, Waldherr R, VanKaick G, Strauss L, Ritz E : Acquired renal cysts in uremic patients-in vivo demonstration by computed tomography. Clin Nephrol 14 : 299-303, 1980
- 4) Fayemi AO, Ali M : The pathology of end stage renal disease in hemodialysis patients. Isr J Med Sci 15 : 901-909, 1977
- 5) Feiner HD, Katz LA, Gallo GR : Acquired cystic disease of kidney in chronic dialysis patients. Urology 17 : 260-264, 1981
- 6) Nagraj N, Thomas AG, Marsha W, Mohammad R, William MB : Clinical characteristics and diagnostic consideration in acquired renal cystic disease. Kidney Int 30 : 748-752, 1986
- 7) Hughson MD, Henningar GR, McManus JFA : Atypical cysts, acquired renal cystic disease and

- renal cell tumors in end stage dialysis kidneys. Lab Invest 42 : 475-480, 1980
- 8) Mirahmadi MK, Vaziri ND : Cystic transformation of end-stage kidneys in patients undergoing hemodialysis. Int J Artif Organs 3 : 267-270, 1980
- 9) Ishikawa I, Saito Y, Onauchi Z, Kitada H, Suzuki S, Kurihara S, Yuri T, Shinoda A : Department of acquired cystic disease and adenocarcinoma of the kidney in glomerulonephritic chronic hemodialysis patients. Clin Nephrol 14 : 1-6 1980
- 10) Levine E, Grantham JJ, Slusher S, Greathouse JL, Krohn BP : CT of acquired cystic kidney disease and renal tumors in long-term dialysis patients. AJR 142 : 125-131, 1984
- 11) Verani R, Wagner E, Thompson C : Case reports. Massive renal and retroperitoneal hemorrhage in case of acquired renal cystic disease with atypical epithelial cell proliferation. Am J Kidney Dis 12 : 66-68, 1988
- 12) 岩崎卓夫, 名倉良一, 畠原康行, 浮草 実, 真田俊吾, 安田和広, 広瀬真紀, 野田春夫, 澤西謙次 : 長期透析患者に見られた後腹膜腔巨大血腫の2例. 腎と透析 14 : 713-717, 1983
- 13) 菅野理平, 中村一郎, 横山 純, 佐久間隆, 田中隆士, 高木善三郎 : 腎嚢胞出血を呈した血液透析患者の2例. 大原年報 28 : 55-60, 1985
- 14) Milutinovich J, Follette WC, Scribner BH : Spontaneous retroperitoneal bleeding in patients on chronic hemodialysis. Ann Intern Med 86 : 189-192, 1977
- 15) Ishikawa I, Saito Y, Kitada H, Kurihara S, Suzuki S, Yuri T, Shinoda A, Onouchi Z, Ushitani K, Yoshida F, Hamano M, Wakatsuki J : Acquired cystic disease of the kidney and renal cell carcinoma. Proceeding of the 22 ed Annual meeting of the Japanese Society of Nephrology : 315, 1979