

—症例報告—

急性腹症の発症を契機に早期診断された
交差血管による間欠性水腎症の1例石井 龍¹ 柳原 剛¹ 高橋 翼² 右田 真¹ 伊藤 保彦¹¹日本医科大学付属病院小児科²日本医科大学武蔵小杉病院小児外科A Case of Intermittent Hydronephrosis due to An Aberrant Vessel Diagnosed Early after the Onset of
Acute AbdomenRyu Ishii¹, Takeshi Yanagihara¹, Tsubasa Takahashi²,
Makoto Migita¹ and Yasuhiko Itoh¹¹Department of Pediatrics, Nippon Medical School²Department of Pediatric Surgery, Nippon Medical School, Musashi Kosugi Hospital

Abstract

A healthy 8-year-old boy was admitted to our hospital with a complaint of abdominal pain. Vital signs were normal, as were blood-tests findings. Urinalysis revealed a significantly elevated level of urinary occult blood, and left renal pelvic dilatation (grade 3 according to the Society for Fetal Urology classification) was detected on abdominal ultrasound. Abdominal contrast-enhanced computed tomography also showed left renal pelvic dilatation, enlargement of the left kidney along with an extrarenal pelvis, and a bright cord-like substance in the left ureter. On the basis of these findings, we diagnosed transient hydronephrosis due to an aberrant vessel in the ureteropelvic junction. The patient's symptoms improved with conservative treatment. Two months later, renal dynamic scintigraphy revealed delayed excretion in the left kidney. Elective left pyeloplasty was performed 8 months after diagnosis, and there has been no recurrence of abdominal pain since. In cases of acute abdomen, a urine test should be performed, and transient hydronephrosis should be considered in the differential diagnosis.

(日本医科大学医学会雑誌 2024; 20: 126-129)

Key words: hydronephrosis, acute abdomen, aberrant vessel, ureteropelvic junction

緒言

間欠性水腎症は、多量の利尿時や体位の変化、不明の誘因により突然腎盂尿管移行部の通過障害が増悪し

水腎症が悪化した結果、腎盂内圧が上昇して腹痛発作を呈する疾患である。頻度は腹痛を訴える児の1.2%¹、腎盂尿管移行部 (pelvis-ureter-junction : PUJ) 通過障害の3.4~6.4%^{2,3}と報告されている。間欠性水腎症は腹痛発作が一時的であり、非発作時には腎盂拡張も

Correspondence to Ryu Ishii, Department of Pediatrics, Nippon Medical School Hospital, 1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo 113-8603, Japan

E-mail: s13-008ir@nms.ac.jp

Journal Website (<https://www.nms.ac.jp/sh/jmanms/>)

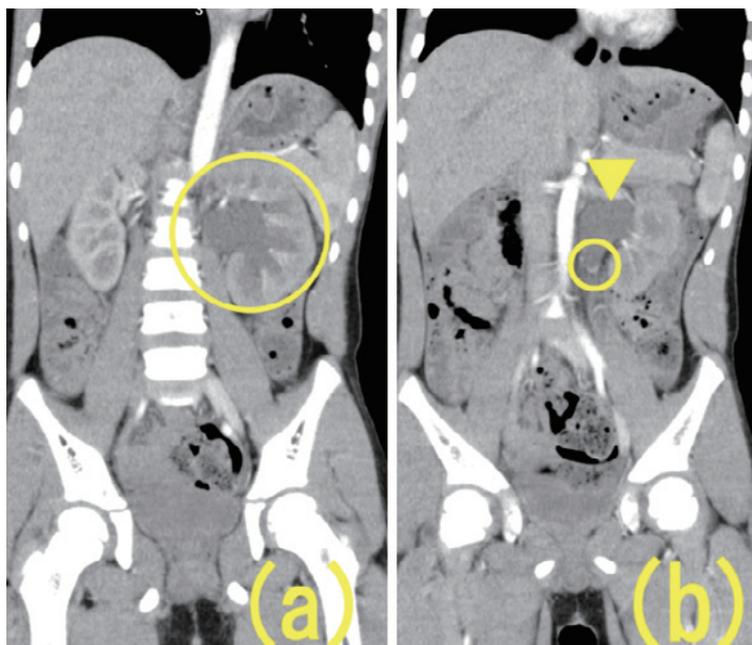


図 1

認めないことから診断は困難であり、腹痛発作を呈するようになってから確定診断に至るまで平均8カ月程度かかるとされている⁴。今回われわれは初回の腹痛発作時に尿検査から間欠性水腎症を疑い、診断しえた8歳男児の例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

8歳、男児

主訴：腹痛

現病歴：生来健康な児。入院当日、18時頃から歩けないほどの突然の激しい腹痛を訴え、当院夜間急病センター受診となった。

既往歴：同様の腹痛のエピソードなし

来院時現症：体温 37.2℃、心拍数 107 回/min、血圧 100/62 mmHg、SpO₂ 98 % (room air)

顔貌：苦悶様

心音：整心雑音なし 呼吸音：清 左右差なし

腹部：左上腹部に激しい自発痛、圧痛あり、反跳痛なし、筋性防御なし、左側肋骨脊柱角に叩打痛あり

血液検査：WBC 5,910/μL、Hb 13.6 g/dL、Plt 294,000/μL、AST 30 IU/L、ALT 19 IU/L、LDH 262 IU/L、CK 188 IU/L、AMY 75 IU/L、T-Bil 0.33 mg/dL、TP 6.9 g/dL、Alb 4.7 g/dL、Na 142 mEq/L、K 3.5 mEq/L、UA 3.4 mg/dL、BUN 13.2 mg/dL、Cre 0.39 mg/dL、CRP 0.03 mg/dL 以下、PT 12.0 sec、

APTT 26.5 sec、fibrinogen 232.8 mg/dL、FDP 2.5 μg/mL 以下

尿検査：比重 1.023、pH 6.0、蛋白±、潜血 3+、糖-、ケトン体-、ビリルビン-、亜硝酸塩-、尿沈渣：赤血球 >100/HPF、白血球 <1/HPF、扁平上皮 <1/HPF

腹部レントゲン検査：腸管ガス分布右側に偏りを認めた。

腹部超音波検査：Grade 3 の左腎盂拡張 (SFU 分類)、ほかの所見は確認できず。

腹部造影 CT 検査：左腎盂拡張、左腎腫大、腎外腎盂 (図 1a)、左尿管に高輝度の索状物 (図 1b) を認めた。

経過：画像検査では尿路結石症は否定的であり、腹部造影 CT 検査で腎外腎盂および左尿管近傍に認められた索状物が造影されることから、交差血管が原因の左腎盂尿管移行部狭窄症およびそれに伴う間欠性水腎症と診断した。入院時排尿を認めており、採血で腎機能は保たれていることから保存的治療の方針とし、絶飲食で維持輸液を行い鎮痛薬の投与を行った。第2病日に疼痛は消失し、第3病日に尿潜血陰性となり全身状態良好で退院となった。退院2カ月後に行った超音波検査では SFU 分類で Grade 1 程度の腎盂拡張所見、腎動態シンチグラフィ検査では分腎機能 (%) は左腎 47.8、右腎 52.2 であり、明らかな閉塞型のレノグラムパターンやデータではなかったが左腎優位に排泄遅延を認めた。以上より、発症8カ月後に手術を行うこと

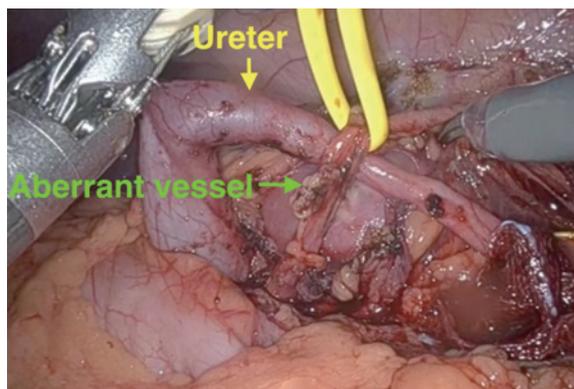


図 2

とした。手術はロボット支援下腹腔鏡下左腎盂形成術で行った。左腎は腎盂拡張、腎外腎盂、腎腫大等の所見は認めなかったが腎盂尿管移行部腹側に交差血管を認めた(図2)。左腎盂を切開、交差血管の背側から尿管を引き抜き、交差血管の腹側で腎盂尿管吻合を行った。術後6カ月の時点で腹痛の再燃はない。

考 察

間欠性水腎症は非発作時には腎の形態に異常を認めないが、疼痛発作時には水腎症の増悪を呈し腹痛を呈する疾患とされている⁵。その病態としては大量の利尿時や体位の変化、あるいは不明の誘因により突然腎盂尿管移行部(pelvis-ureter-junction: PUJ)の通過障害が増悪し、腎盂内圧が上昇し腹痛、嘔気、嘔吐等の消化器症状が出現し、そして消失する。発作時の症状は数分から数時間続く腹痛で随伴症状としては嘔吐が出現するのみである^{4,6,7}。本疾患は急性胃腸炎や便秘、周期性嘔吐症として治療され経過観察されていた報告が多い^{6,8,9}。本症例でも症状は激しい腹痛のみであり、発作時の身体所見のみでは腎疾患を積極的に疑うのは困難であった。間欠性水腎症で認められる検査所見としては、尿潜血が±以上、肉眼的血尿(30%)がある^{3,6,7}。診断確定には腹痛発作時の水腎症を証明する必要があるが¹⁰、精査を行う時点では水腎症が改善していることが多く診断に苦慮することが多い。本症例では主訴が激しい腹痛のみであり、鑑別のためにまず採血、尿検査、腹部レントゲン検査を施行した。尿検査で潜血を認めたことから腎疾患を疑い、腹部超音波検査を行い水腎症を認めた。さらに急性腹症と水腎症の鑑別として結石や腫瘍による尿管閉塞を確認するため来院5時間後の時点で腹部造影CT撮影し診断に至った。本症例のように間欠性水腎症を初回の腹痛発作で診断に至ることができたことは極めてまれであっ

た。多くの症例では初回発症時に診断されることはなく、平均8カ月後に診断がついていた。診断が遅れ腎摘出に至った例⁶も報告されており、早期診断を行うことが重要であると考えられた。

間欠性水腎症の原因はPUJの器質的/機能的な狭窄と考えられている。通常の先天性水腎症と異なる点は間欠期にはこの狭窄が顕在化しない点である。PUJの狭窄の原因としては、内因性狭窄、交差血管や索状物による外部からの圧迫、尿管ポリープなどが挙げられ¹⁰、尿管の器質的(内因性)狭窄が一番多いとされる^{7,11}。過去の報告^{3,6}では10例中2例が交差血管、1例が索状物による圧迫、外膜内での尿管の屈曲4例、尿管ポリープが2例、内因性狭窄が1例であった。本症例は交差血管によるものであった。

手術適応については、絶対適応はないが利尿レノグラムでの閉塞性パターン、著しい仙痛発作、患側の腎機能低下などがあれば手術適応としていることが多い¹⁰。腎盂形成術は腹腔鏡下とロボット支援腹腔鏡下(RALP)の2つがあるが、RALPの方が総手術時間とドレーン留置期間が短く術注出血量が少ないとの報告がある¹²。腎盂形成術後の悪化症例は5%未満となっており¹³、間欠性水腎症は手術が有効な治療法であると考えられる。本症例でもRALP腎盂形成術を行い、手術後良好な経過を辿っている。術後のフォローアップ期間に明確な指標はないが、術後3カ月での利尿剤負荷レノグラムにおけるT1/2が20分以下であれば、それ以上の経過観察は必要ないとしている報告もある¹⁴。

結 語

生来健康な児において急性腹症を発症し、初回の腹痛発作で診断に至った間欠性水腎症の1例を経験した。本症は頻度は少ないが、小児の急性腹症の鑑別の1つとして念頭に置く疾患である。腹痛発作の際には積極的な尿検査と腹部超音波検査が本疾患を早期に診断、治療するうえで重要であると考えられた。

Conflict of Interest : 開示すべき利益相反はなし。

文 献

1. K Fu, W Jia, W Fu, et al: Abdominal pain as a result of intermittent hydronephrosis. *Eur Rev Med Pharmacol Sci* 2018; 22: 3126-3129.
2. Males RS: Intermittent hydronephrosis: the occult ureteropelvic obstruction. *J Urol* 1983; 130: 863-866.
3. 松本成史, 島田憲次, 細川尚三, 松本富美: 間欠性水腎症の臨床的検討. *泌尿紀要* 1997; 43: 703-706.

4. Tsai JD, Huang FY, Lin CC, et al: Intermittent hydronephrosis secondary to ureteropelvic junction obstruction. *Pediatrics* 2006; 117: 139-146.
5. Nesbit RM: Diagnosis of intermittent hydronephrosis: importance of pyelography during episodes of pain. *J Urol* 1956; 75: 767-771.
6. 芦田 明, 松村英樹, 中倉兵庫ほか: 間歇的腹痛を呈した水腎症の5例. *日本小児腎臓病学会雑誌* 2007; 20: 117-122.
7. 樋口彰宏, 中井秀郎, 宮里 実, 泉谷正伸, 穴戸清一郎, 川村 猛: 間欠性水腎症の臨床的検討. *日本泌尿器科学会雑誌* 1996; 87: 1145-1150.
8. 高野智子, 塚原宏一, 重松陽介ほか: 反復性腹痛を契機に発見された腎盂尿管移行部狭窄による水腎症の1例. *小児科臨床* 1993; 46: 567-569.
9. 金井宏明, 水間悟氏, 佐藤広樹, 武井義親: 周期性嘔吐症候群と診断されていた間欠的水腎症の男児例. *小児科* 2017; 58: 411-415.
10. 関根孝司: 間欠性水腎症. *小児内科* 2008; 40: 750-752.
11. 田島基史, 久松英治, 中田千香子, 村本厚記, 吉野 薫: 間欠的水腎症の閉塞機転の検討. *日本小児泌尿器科学会雑誌* 2022; 31: 62-65.
12. Lukkanawong N, Honda M, Teraoka S, et al: A Comparison Between Laparoscopic and Robot-Assisted Laparoscopic Pyeloplasty in Patients with Ureteropelvic Junction Obstruction. *Yonago Acta Medica* 2022; 65: 126-131.
13. 日本小児泌尿器科学会: 小児先天性水腎症(腎盂尿管移行部通過障害)診療手引き 2016. <https://jspu.jp/download/guideline/tebiki2016-1.pdf>
14. Pohl HG, Rushton HG, Park JS, Belman AB, Majd M: Early diuresis renogram findings predict success following pyeloplasty. *J Urol* 2001; 165: 2311-2315.

(受付: 2024年1月11日)

(受理: 2024年3月19日)

日本医科大学医学会雑誌は、本論文に対して、クリエイティブ・コモンズ表示 4.0 国際 (CC BY NC ND) ライセンス (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>) を採用した。ライセンス採用後も、すべての論文の著作権については、日本医科大学医学会が保持するものとする。ライセンスが付与された論文については、非営利目的の場合、元の論文のクレジットを表示することを条件に、すべての者が、ダウンロード、二次使用、複製、再印刷、頒布を行うことができる。