

貧血をきたす肉眼的血尿を認め糸球体腎炎との鑑別を要した左腎杯乳頭部の血管腫の1例

内田大貴*¹ 中田 健*² 鈴木美穂*³ 山崎侑子*²
石田 楓*² 平岡順治*¹ 工藤明子*² 橋永絵理*²
青木宏平*² 東 寛子*² 福長直也*² 縄田智子*³
柴田洋孝*²

A case of hemangioma at the left renal papilla of the calix with anemia and gross hematuria

Hiroki UCHIDA *¹, Takeshi NAKATA *², Miho SUZUKI *³, Yuko YAMASAKI *², Kaede ISHIDA *¹,
Junji HIRAOKA *¹, Akiko KUDO *², Eri HASHINAGA *², Kouhei AOKI *², Hiroko HIGASHI *²,
Naoya FUKUNAGA *², Tomoko NAWATA *³, and Hirotaka SHIBATA *²

*¹ Department of Internal Medicine, Tsukumi Central Hospital,

*² Department of Endocrinology, Metabolism, Rheumatology and Nephrology, Faculty of Medicine, Oita University,

*³ Department of Nephrology, Oita Prefectural Hospital, Oita, Japan

要 旨

症例は18歳男性。生来健康であり、過去に検尿異常などを指摘されたことはない。20XX年マラソン大会後に肉眼的血尿を認めた。近医受診し、尿蛋白も陽性であった。造影CTでは、腎・尿路に器質的異常なく、その後、肉眼的血尿も自然消失し、尿蛋白・潜血ともに陰性となった。1年後に誘因なく肉眼的血尿の再発を認め、Hb 8.0 g/dLと貧血も進行し入院となった。泌尿器科的疾患を疑い、造影CTや腎動脈造影をしたが明らかな異常所見は認めなかった。膀胱鏡を行い、左尿管口からの血尿が確認された。尿管鏡検査では左腎杯乳頭部に血管腫を認め、同部位からの出血が確認された。血管腫にレーザー焼灼を施行して止血し、以降、肉眼的血尿は消失し貧血の進行も認めなかった。以上より、血尿および貧血の原因は腎杯乳頭部の血管腫によるものと判断した。本症例は若年であり、経過中比較的多量の尿蛋白や低補体血症も合併しており、糸球体腎炎の合併も否定できなかったが、尿管鏡が診断および治療に有用であった。

An 18-year-old man was admitted to our hospital due to gross hematuria and proteinuria after a marathon race. Contrast-enhanced CT showed no remarkable findings. His gross hematuria and proteinuria disappeared without treatment. One year later, he was admitted to our hospital due to recurrent gross hematuria and anemia (serum hemoglobin level of 8.0 g/dL). Both contrast-enhanced CT and renal arteriography revealed no remarkable findings; however, cystoscopy showed that his hematuria came from the left ureteral orifice. Ureteroscopy revealed hemorrhage from a large hemangioma at the left renal papilla of the calix. He presented with intermittent gross hematuria, proteinuria, and hypocomplementemia, suggesting the possibility of glomerulonephritis. His gross hematuria and proteinuria improved after laser coagulation was performed.

Jpn J Nephrol 2017 ; 59 : 574-577.

Key words : hematuria, ureteroscopy, hemangioma

緒 言

片側の上部尿路からの持続的・断続的な肉眼的血尿があり、かつ放射線学的検査および尿細胞診が陰性である兆候を特発性腎出血と総称している。近年、腎盂尿管鏡装置と手技の進歩によりその原因が判明しており、今回の血管腫も突発性腎出血が原因の一つとされている¹⁾。そのなかで、今回われわれが経験したような貧血の進行を伴う血管腫の症例も多数報告されている。今回、若年に起きた貧血を伴う肉眼的血尿と比較的多量の蛋白尿を呈する腎杯乳頭部の血管腫に対して、尿管鏡でのレーザー焼灼術が、診断および治療に有用であった症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：18 歳，男性

主 訴：肉眼的血尿，貧血，蛋白尿

家族歴：特記事項なし

生活歴：陸上部に所属，長距離走の選手。毎日約 8 km 走る。

現病歴：20XX-1 年 6 月のマラソン大会後に肉眼的血尿があり，近医検査にて尿蛋白 1+，沈渣で赤血球 > 100 /HPF を認めた。造影 CT で腎・尿路に器質的異常なく，その後肉眼的血尿も自然軽快した。同年 12 月の当初初診時には尿潜血，尿蛋白ともに陰性であった。20XX 年 10 月頃から特に誘因なく再び肉眼的血尿が持続し，Hb 8.0 g/dL と貧血も進行しており入院となった。

入院時現症：身長 175.0 cm，体重 60.0 kg，BMI 19.5 kg/m²，血圧 118/73 mmHg，脈拍 78 回/分・整，呼吸 12/分，SpO₂(room air) 98%，体温 36.9 度。眼瞼結膜に貧血あり，頸部に明らかかなリンパ節腫大なし，胸部ラ音なし，心雑音なし，腹部は平坦・軟，圧痛や血管雑音なし，下肢に浮腫や紫斑なし

入院時検査所見：尿所見；尿潜血 3+，尿蛋白 1+，白血球 -，赤血球 50～99/HPF，1 日推定蛋白尿 2.3 g/gCr，変形赤血球なし。末梢血；白血球 3,700/μL，赤血球 300 万/μL，Hb 8.0 g/dL，血小板 22.6 万/μL。血液生化学；TP 6.3 g/dL，Alb 4.3 g/dL，AST 23 IU/L，ALT 14 IU/L，BUN 9.5 mg/dL，Cr 0.7 mg/dL，血清鉄 11 μg/dL。免疫血清学；CRP 0.02 mg/dL，フェリチン 29 ng/mL，IgG 819 mg/dL，IgA 168 mg/dL，IgM 79 mg/dL，C3 74.6 mg/dL，C4 10.8 mg/dL，CH50 35.1 U/mL，ANA-T 40 (pattern SP)，dsDNA 2.4 IU/mL，ssDNA 6 AU/mL，RF < 10 U/mL，PR3-ANCA < 0.1U/mL，MPO-

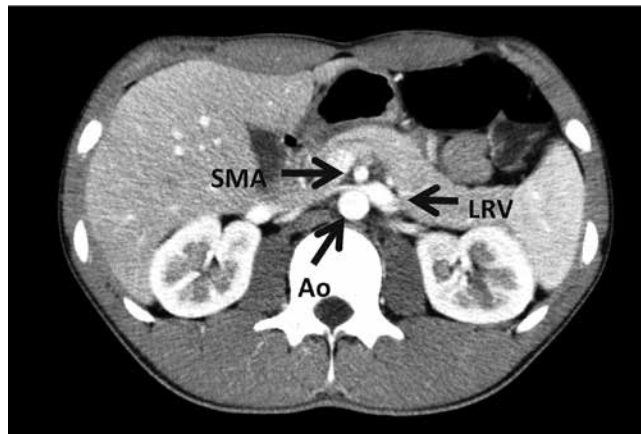


Fig. 1. Enhanced abdominal computed tomography

SMA : superior mesenteric artery, Ao : aorta, LRV : left renal vein

ANCA < 0.1U/mL，クリオグロブリン 陰性，ASO 31 IU/mL

臨床経過：入院後も肉眼的血尿を認め，貧血をきたすほどの非糸球体性血尿であり，補体低下を伴っていたが泌尿器科疾患の精査を進めた。造影 CT では左腎静脈の拡張が認められたが(Fig. 1)，超音波ドプラ法では静脈血流のうっ滞は認めず，ナットクラッカー現象は否定的であった。膀胱鏡では左尿管口からの血尿が確認されたが，腎動脈造影検査では左右ともに明らかな異常血管は認めなかった。逆行性腎盂造影でも左尿管，腎盂に形態的異常はなかったが，尿管鏡にて左上腎杯はほぼ怒張した血管で覆われており，中腎杯，下腎杯にも小さな血管の露出が認められた(Fig. 2)。血管腫に対してホルミウム YAG レーザー焼灼を施行し，以降肉眼的血尿は消失した。2 カ月間の鉄剤投与で貧血も Hb 11.9 g/dL まで改善し退院となった。退院後，現在まで肉眼的血尿の再発はなく経過している。

考 察

臨床的に原因不明な上部尿路からの出血を特発性腎出血と総称するが，近年は診断法の進歩，なかでも直接腎盂・尿管を観察可能な腎盂尿管鏡の普及に伴い原因が明らかになってきている。公文はそれを踏まえ，狭義の意味での特発性腎出血を，通常の内科的・泌尿器科的検査では原因を明らかにしえない，間欠的あるいは持続的な片側性の肉眼的血尿にのみ用いる症候名としている²⁾。さらに Takazawa らは，最新の腎盂尿管ビデオスコープを用いて，特発性腎出血の内視鏡所見を網羅的に報告している³⁾。今回われわれが経験した症例は，その内視鏡所見から血管腫に該当す



Fig. 2. Ureteroscopic image of hemangioma at the left renal papilla

ると判断した。Tawfikらは過去の良性の片側性血尿を認めた症例をまとめているが、107例のうち32例で腎杯血管腫を認め⁴⁾、上原らも悪性を認めた血尿3例を除いた88例のうち19例で血管腫を報告している⁵⁾。また、本症例のように貧血を伴う症例も稀ではなく、八木らが報告した血管腫の3症例すべてでHb 7.5~9.3 g/dLと貧血を合併しており⁶⁾、伊藤らの報告でも持続する血尿で貧血をきたしたとしている⁷⁾。

慢性的・間欠的血尿が持続し貧血を認める場合には、尿路悪性腫瘍、ナットクラッカー症候群などのほかに、本症例のような血管腫も念頭に置く必要がある。さらに、過去の報告も本症例と同様に造影CT、血管造影、逆行性尿路造影にて所見を認めないものがほとんどであり、腎盂尿管鏡での精査が必須と考えられる。

腎盂尿管鏡での精査にて明らかになった特発性腎出血の原因として、血管腫以外にも腎杯に発生した微小血管破綻(minute venous rupture: MVR)が多く報告されている。このMVRについて公文は、特発性腎出血の頻度が左側で多い点と解剖学的な観点から、ナットクラッカー現象と似た左腎静脈圧亢進による静脈洞の破綻が原因だとしている²⁾。本症例では、超音波画像検査にて大動脈と上腸間膜動脈の角度は鋭角で、左腎静脈遠位はやや拡張が見られたが、正常の範囲内であり、自由呼吸下、深呼吸下、呼吸停止下いずれにおいても、明らかな血流のうっ滞や逆流も観察され

なかったこと、側副血行路の発達がなかったことより、ナットクラッカー現象の可能性は低いと考えた。腎盂尿管鏡でも血管腫以外の所見は認めなかったが、左腎静脈の拡張を伴っていたことから、体位や運動による間欠的な左腎静脈圧亢進が血管腫からの出血を生じさせ、運動後のあるいは間欠的な血尿の原因となった可能性は考えられる。

これら血管腫およびMVRの治療法としては、レーザー焼灼術が再発も少なく有効とされており⁸⁾、本症例も現在まで再発なく経過している。

また、今回は血尿の原因である血管腫を腎盂尿管鏡で特定できたが、尿蛋白(2.28 g/gCr)と血尿(RBC 99/HPF)に加え、原因は不明であるが低補体血症(C3 74.6 mg/dL, C4 10.8 mg/dL, CH50 35.1 U/mL)を認めており、ループス腎炎活動期、溶連菌感染後糸球体腎炎、膜性増殖性糸球体腎炎など原発性あるいは続発性糸球体腎炎も鑑別として考えられ、腎生検を施行することも考えた。一方血尿は、尿沈渣において変形の見られない均一赤血球が多数であり、膀胱鏡所見の段階で片側の血尿と判明し、以後、尿管鏡を行うことで診断・治療できた。

結 語

特発性腎出血の原因として血管腫は比較的多い疾患であり、貧血を伴う例もあることから、蛋白尿や低補体血症を伴う若年であっても、非糸球体性の血尿と考えられる場合は積極的に膀胱鏡や腎盂尿管鏡での精査を検討すべきである。

謝 辞

稿を終えるにあたり、本症例に関する診断治療に関して、ご協力いただいた腎泌尿器外科学講座 三股浩光氏、秋田泰之氏に感謝致します。

本症例は、第45回日本腎臓学会西部学術集会にて「若年男性に起こった肉眼的血尿の一例」として発表した。

利益相反自己申告：申告すべきものなし

文 献

- 堀江重郎, 伊藤秀一, 岡田浩一, 菊池春人, 成田一衛, 西山勉, 長谷川友紀, 三上裕司, 山縣邦弘, 油野友二, 武藤 智, 血尿診断ガイドライン編集委員会, 日本腎臓学会, 日本泌尿器科学会, 日本小児腎臓病学会, 日本臨床検査医学会, 日本臨床衛生検査技師会. 血尿診断ガイドライン 2013. 日腎会誌

- 2013 ; 55(5) : 861-946.
2. 公文裕巳. 肉眼的血尿に潜む疾患 特発性腎出血が比較的高頻度に. *Mod Med* 1992 ; 21(2) : 28-31.
 3. Takazawa R, Kitayama S, Tsujii T. Digital ureteroscopic visualization of lesions responsible for chronic unilateral hematuria, so-called idiopathic renal bleeding. *Int J Urol* 2014 ; 21(2) : 227-228.
 4. Tawfik ER, Bagley DH. Ureteroscopic evaluation and treatment of chronic unilateral hematuria. *J Urol* 1998 ; 160(3 Part1) : 700-702.
 5. 上原慎也, 門田晃一, 永井 敦, 那須保友, 公文裕巳, 津川昌也. 特発性腎出血に対する腎盂尿管鏡の有用性に関する検討. *Jpn J Endourol ESWL* 2005 ; 18(3) : 237.
 6. 八木静男, 後藤俊弘, 原田尚毅, 北川敏博, 福田聡一郎, 角純啓, 山形仁明, 有馬純一郎, 川原和也, 牧之瀬信一, 山田保俊, 尾立源昭, 下稲葉耕生, 速見浩士, 川島尚志, 大井好忠. 腎杯血管腫に対する内視鏡的治療の経験. *西日泌尿器科* 1997 ; 59(8) : 658-662.
 7. 伊藤寿樹, 丸山哲史, 波多野伸輔, 永江浩史, 麦谷荘一, 鈴木和雄, 大園誠一郎. 内視鏡下に診断・治療した腎杯乳頭部血管腫の 1 例. *泌尿器科紀要* 2004 ; 50(4) : 288.
 8. Mugiya S, Ozono S, Nagata M, Takayama T, Furuse H, Ushiyama T. Ureteroscopic evaluation and laser treatment of chronic unilateral hematuria. *J Urol* 2007 ; 178 : 517-520.