

## —症例報告—

## 水腎は増悪するが閉塞性腎障害が進行しない巨大水腎症の2例

竹下 絵理<sup>1</sup> 高橋 翼<sup>2</sup> 柳原 剛<sup>1</sup><sup>1</sup>日本医科大学武蔵小杉病院小児科<sup>2</sup>日本医科大学武蔵小杉病院小児外科

Two cases with severe hydronephrosis not developing obstructive nephropathy

Eri Takeshita<sup>1</sup>, Tsubasa Takahashi<sup>2</sup> and Takeshi Yanagihara<sup>1</sup><sup>1</sup>Department of Pediatrics, Nippon Medical School Musashi Kosugi Hospital<sup>2</sup>Department of Pediatric Surgery, Nippon Medical School Musashi Kosugi Hospital**Abstract**

Congenital ureteropelvic junction obstruction (UPJO) is one of the most common causes of hydronephrosis in children. We report on 2 patients with severe hydronephrosis detected prenatally who did not develop obstructive nephropathy after birth. The pathogenesis of the dilation in both patients was UPJO. Although much controversy still surrounds the clinical significance of antenatal hydronephrosis and the management of patients, our follow-up for these 2 patients consisted just of serial blood tests, urine tests and technetium-99m-labeled dimercaptosuccinic acid renal scintigraphy (DMSA). Patient 1 had bilateral hydronephrosis, and the renal uptake of DMSA in the right kidney was severely decreased. Therefore, we performed a right percutaneous nephrostomy and observed the left kidney conservatively. By the time the patient was 18 months old, the hydronephrosis of the left kidney had developed considerably, with the kidney reaching into the pelvic cavity; however, there was no decrease in the renal uptake of the kidney. Hydronephrosis was also detected prenatally in the right kidney of Patient 2, but the left kidney was morphologically and functionally normal. At the age of 8 months, the patient developed acute focal bacterial nephritis (FBN) in the right kidney, with decreased renal uptake. There was no subsequent decrease in renal uptake, but the hydronephrosis worsened, and the kidney increased drastically in size. Some researchers recommend early surgical intervention in cases of severe UPJO to achieve early relief from obstruction. However, as shown in this report, some patients show no degeneration of kidney function in spite of worsening hydronephrosis. Careful consideration of the risks associated with general anesthesia and surgery are needed before deciding on treatment.

(日本医科大学医学会雑誌 2017; 13: 136-139)

**Key words:** prenatal hydronephrosis, ureteropelvic junction obstruction, conservative therapy, surgery, dimercaptosuccinic acid

## 緒言

近年、胎児期の超音波によるスクリーニング検査が普及するにつれ、出生前から高度の水腎症が見つかる機会が増えた。一方、閉塞性腎障害 (Obstructive Nephropathy) は、閉塞の程度が著しく、期間が長いほど腎機能障害が著しいとされ、同時に閉塞の解除によって腎機能の改善を期待できるとされる<sup>1</sup>。しかし近年、出生後の水腎の程度は腎機能障害とは関係がなく、非手術的な治療を勧める報告もみられ、高度な先天性水腎症に対するコンセンサスの得られた治療方針は確立していない<sup>2,3</sup>。われわれは、胎児期から非常に高度な水腎症を呈していたにも関わらず、手術を行わずに経過観察し得た2例を経験したため報告する。

## 症例

症例1は、胎児エコーで両側 SFU Grade 4の水腎症を指摘された。周産期を通して羊水量に異常はなく、正常分娩で出生した。出生後、腎盂尿管移行部狭窄による水腎症と診断された。生後2カ月時に施行した technetium-99m-labeled dimercaptosuccinic acid renal scintigraphy (以下 DMSA ; 図 1a) では、左腎に比し右腎の取り込み低下が顕著であった (摂取率 左 21.1%, 右 5.7%)。左腎はまだ機能が保たれており、右腎も閉塞を解除することにより機能回復する可能性があることから、右腎瘻造設を行い経過を観る方針とした。ST 合剤による予防内服を行い尿路感染症のコントロールは良好、DMSA による左腎機能障害の増

悪もなく経過していたが、右腎機能が改善することもなかった。

その後、左腎は増大し続け、1歳頃には腸骨を超え骨盤腔内に達した。1歳6カ月時に施行した MRU 所見を 図 2 に示す。同時に施行した DMSA (図 1b) では、左摂取率 24.8%, 右摂取率 3.7% であり、生後2カ月時に施行した検査結果と比較して、左腎機能の明らかな低下は認めなかった。

しかし、腹満が著明で日常生活に支障を来すと判断したため、1歳6カ月で左腎瘻造設術、1歳9カ月で左腎盂形成術を施行した。

症例2は胎児エコーで右 SFU Grade 4の水腎症を指摘された。出生後、左腎に異常はなく、右腎盂尿管移行部狭窄と診断された。3歳時の利尿レノグラムを 図 3 に示す。左腎は正常型で、ラシックスに対する反応も良好であった。また、血清学的データ、尿所見とも異常を認めていない (データ未掲載)。8カ月時に右腎を焦点とした急性巣状細菌性腎炎 (FBN) に罹患した際に DMSA による摂取率が低下したが、その後は ST 合剤による予防内服を行い、尿路感染症の再発はなく経過している。図 4 に相対摂取率<sup>4</sup>の推移を示す。FBN に罹患した6カ月後 (1歳2カ月) の時点で相対摂取率の低下を認めるが、その後は水腎の増悪にも関わらず相対摂取率が低下することなく経過している。しかし、やはり腹満が著明なため、右腎盂形成術を施行予定である。

## 考察

高度な先天性水腎症に対するコンセンサスの得られ

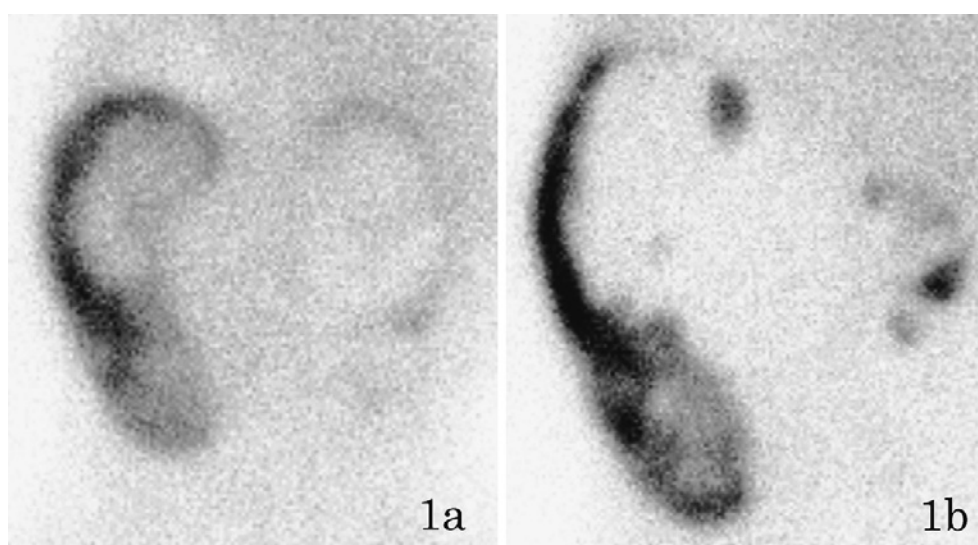


図1 99mTc DMSA (Patient 1) : 2 month-old (a), 18 month-old (b)

た治療方針は確立していない。出生後の対応についても、1カ月以内に閉塞を解除するべきとする報告<sup>5</sup>から、分腎機能を評価しつつ経過を観るべきとする報告<sup>3,6,7</sup>まである。

閉塞性腎症に伴う腎障害は、主に発生段階の腎に逆行性の圧負荷がかかることによって生じると考えられる<sup>2</sup>。しかし、本症例のように、高度水腎症があっても腎機能障害が進行しない報告も存在する。腎機能障害が進行しない理由として、小児では腎線維被膜に伸展性があるため、腎盂の拡大に伴って腎そのものも大きくなり、腎組織内圧の上昇が緩和されていることが考えられる。また、拡張した腎外腎盂粘膜にはそれ程

圧がかからずに血流が保持され、腎血流と糸球体濾過が保持されている可能性もある。

一方、新生児・乳児期の分腎機能を厳密に評価することは難しい。DMSA を用いた相対摂取率を計測することにより再現性良く評価できると報告<sup>4</sup>されているが、両側の腎が障害されている場合にはこの限りではない。症例1でも、腎摂取率の絶対値が経時的に低下はしていないが、本来獲得しているはずの腎機能上昇を得ているかの評価は困難である。症例1の右腎は腎瘻造設後感染もなく経過しており、腎機能障害の進行がないと仮定して相対摂取率を評価すると、2カ月

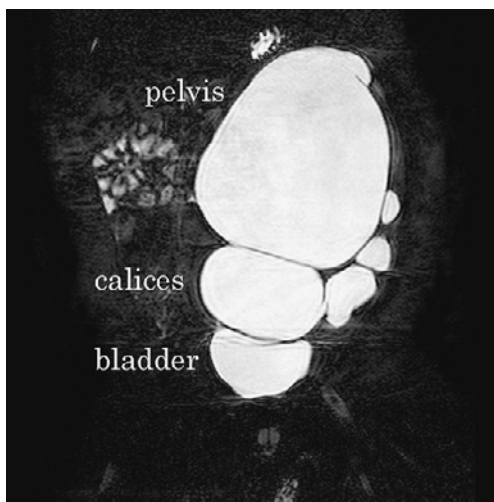


図2 MRU (Patient 1) : 18 month-old

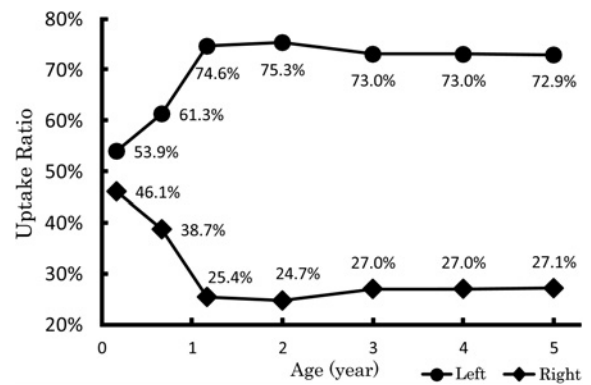


図4 Changes of uptake ratio (Patient 2). The uptake ratio of right kidney decreased by the age of 1 year because of acute focal bacterial nephritis in right kidney. After that, the ratio did not decrease although the size of right kidney continued to increase.

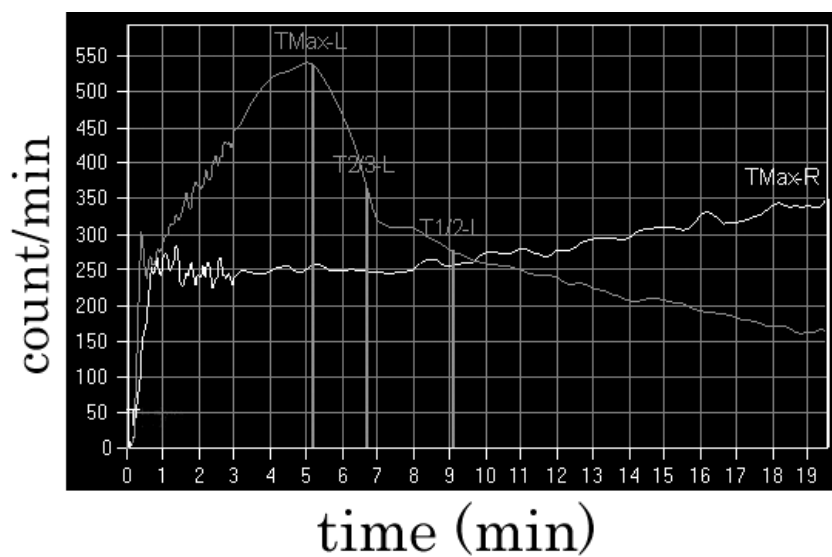


図3 99mTc DTPA (Patient 2) : Furosemide was injected at the time of 5 min. Left kidney (grey line) shows normal pattern and the response to the furosemide injection was good. Right kidney (white line) shows obstructive pattern.

時 左78% 右22%, 1歳6カ月時 左87% 右13%となる。やはり明らかな左腎機能の低下は認めないと考えられた。

近年は、閉塞性腎障害の予後を予測するバイオマーカーも複数報告されている<sup>8-11</sup>。手術や麻酔に伴うリスクを考慮すると、尿路感染と腎機能障害の進行に留意しつつ、児の成長を待って待機的に手術することも考慮されるべきと考える。

### まとめ

高度な水腎症であっても、慎重な腎機能評価のもと待機的に外科的処置を行うことも考慮すべきである。

### 文献

1. Skorecki K, Chertow GM, Marsden PA, Yu ASL, Taal MW: Urinary Tract Obstruction. In Brenner and Rector's The Kidney 10th edition. 2016; pp 1257-1282, SAUNDERS.
2. Chevalier RL: Congenital urinary tract obstruction: the long view. *Adv Chronic Kidney Dis* 2015; 22: 312-319.
3. Oliveira EA, Oliveira MC, Mak RH: Evaluation and management of hydronephrosis in the neonate. *Curr Opin Pediatr* 2016; 28: 195-201.
4. Flower MA, Meller ST, Chittenden SJ, Fielding SL, Evans K, Gordon I: Absolute <sup>99</sup>Tcm-DMSA renal uptake in children: optimum time to scan. *Nucl Med Commun* 1995; 16: 572-574.
5. Jiang D, Tang B, Xu M, et al.: Functional and Morphological Outcomes of Pyeloplasty at Different Ages in Prenatally Diagnosed Society of Fetal Urology Grades 3-4 Ureteropelvic Junction Obstruction: Is It Safe to Wait? *Urology* 2016; epub ahead.
6. Josephson S: Antenatally detected, unilateral dilatation of the renal pelvis: a critical review. 2. postnatal non-operative treatment—long-term hazards, urgent research. *Scand J Urol Nephrol* 2002; 36: 251-259.
7. Chertin B, Pollack A, Koulikov D, et al.: Conservative treatment of ureteropelvic junction obstruction in children with antenatal diagnosis of hydronephrosis: lessons learned after 16 years of follow-up. *Eur Urol* 2006; 49: 734-738.
8. Madsen MG: Urinary biomarkers in hydronephrosis. *Dan Med J* 2012; 60: B4582.
9. Carpenter AR, McHugh KM: Role of renal urothelium in the development and progression of kidney disease. *Pediatr Nephrol* 2016; epub ahead.
10. Chevalier RL: Prognostic factors and biomarkers of congenital obstructive nephropathy. *Pediatr Nephrol* 2016; 31: 1411-1420.
11. Rickard M, Lorenzo AJ, Munoz C, Braga LH: Parenchyma to Hydronephrosis Area Ratio (PHAR) is a Promising Outcome Measure to Quantify Upper Tract Changes in Infants with High-Grade Prenatal Hydronephrosis. *Urology* 2017; epub ahead.

(受付：2017年2月17日)

(受理：2017年4月5日)