

小児間欠性水腎症の手術時期についての検討

九州小児泌尿器研究会¹⁾ 済生会川内病院 泌尿器科・小児泌尿器科²⁾

鹿児島大学大学院 医歯学総合研究科 腫瘍学講座 泌尿器科学分野³⁾

久留米大学医学部 小児科学講座⁴⁾ 福岡市立こども病院 泌尿器科⁵⁾

福岡市立こども病院 腎疾患科⁶⁾ 佐賀大学医学部 泌尿器科学講座⁷⁾

佐賀大学医学部 小児科⁸⁾ 大分大学医学部 腎泌尿器外科学講座⁹⁾

長崎大学大学院 医歯薬学総合研究科 泌尿器科学¹⁰⁾

宮崎大学医学部 発達泌尿生殖医学講座 泌尿器科学分野¹¹⁾

宮崎大学医学部 小児科¹²⁾ 琉球大学大学院 医学研究科 医科学専攻腎泌尿器外科学講座¹³⁾

井手迫俊彦*¹⁾²⁾・田中 征治¹⁾⁴⁾・山口 孝則¹⁾⁵⁾・郭 義胤¹⁾⁶⁾・野口 満¹⁾⁷⁾

大塚 泰史¹⁾⁸⁾・三股 浩光¹⁾⁹⁾・酒井 英樹¹⁾¹⁰⁾・上村 敏雄¹⁾¹¹⁾・此元 隆雄¹⁾¹²⁾

中川 昌之¹⁾³⁾・宮里 実¹⁾¹³⁾

(受付日: 2022 年 12 月 7 日, 受理日: 2023 年 1 月 17 日)

抄録:

【目的】小児の間欠性水腎症は診断が難しいことがあり, 手術までに時間がかかることがある。過去 10 年間に九州小児泌尿器研究会の 7 施設で診療した小児間欠性水腎症例を対象とし, 発症から手術までの期間に影響する因子について明らかにする。

【対象・方法】対象は 2007 年 1 月から 2016 年 12 月までの 10 年間に九州小児泌尿器研究会の 7 施設を初診した小児間欠性水腎症例 29 例。診療録をもとに臨床経過および所見について後方視的な検討を行った。

【結果】初回発作年齢は中央値 5.3 歳, 間欠性水腎症の診断時年齢は中央値 6.2 歳で, 初回発作時から間欠性水腎症の診断までの期間は中央値 1 カ月だったが, 5 例 (17.2%) では 1 年以上を要していた。観察期間中のいずれかの時期で分腎機能を評価された 25 例のうち 3 例 (12%) で有意な分腎機能の低下を認めた。腎盂形成術が施行された 19 例 (65.5%) の手術時年齢は中央値 7.8 歳で, 初回発作時から手術までの期間は中央値 23 カ月であった。10 例 (34.5%) は症状軽快のため手術は施行されず保存的に経過をみられていた。初回発作から手術までの期間と初回発作年齢の間に統計学的に有意な相関は認められなかったが ($p = 0.245$), 初回発作年齢が低いほど手術までの期間が長い傾向があった。

【結論】小児間欠性水腎症では, 年齢が低いほど発症から手術までの期間が長い傾向がある。

(西日泌尿, 85: 190-195, 2023)

キーワード: 間欠性水腎症, 小児, 腎盂尿管移行部通過障害

緒 言

間欠性水腎症は, 水腎症の出現に伴う腹痛発作が主な症状であるが, 受診時には水腎症の消失に伴い症状が消失していることが多々ある。そのため, 他の消化器系疾患や心身症などとの鑑別が難しいことがあり, 診断や治

療までに時間がかかることがある。一方, 間欠性水腎症では多くの症例で患側分腎機能は保たれているが¹⁾, 診断時にすでに患側分腎機能の低下を認めることもあり²⁾, 発症から手術までの期間が短いに越したことはない。

過去 10 年間に九州小児泌尿器研究会の 7 施設で診療した小児間欠性水腎症例を対象として, 発症から手術までの期間に影響する因子について後方視的に検討した。

対 象 と 方 法

2007 年 1 月から 2016 年 12 月までの 10 年間に九州小

* 〒 895-0074 鹿児島県薩摩川内市原田町 2 番 46 号
TEL 0996-23-5221, FAX 0996-23-9797
E-mail itesakotoshihiko@saiseikai-sendai.jp

児泌尿器研究会の7施設を初診した18歳以下の間欠性水腎症例のうち、その他の尿路疾患、尿路の手術既往がある症例を除外した29例を対象として、初回発作年齢、間欠性水腎症の診断時年齢、発作時の患側腎超音波検査所見、手術の有無および手術時年齢、術中所見、手術前後の患側分腎機能比について診療録をもとに集計し、後方視的な検討を行った。

水腎症の評価は、日本小児泌尿器科学会分類(Japanese Society for Pediatric Urology (JSPU) 分類)³⁾に従った。間欠性水腎症の定義は、非発作時には水腎症を認めないか、もしくはJSPU Grade 1であるが、発作時には非発作時よりも水腎症の増悪を認め、これらが可逆的であることとした。腎盂尿管移行部の術中所見については、交差血管、ポリープ、その他に分類した。患側分腎機能は腎シンチグラフィー(MAG3, DTPA, DMSA)にて評価し、分腎機能比40%未満を有意な機能低下とした。発症時の分腎機能は発症から3カ月以内の、術後の分腎機能は術後1年以上後の腎シンチグラフィー所見を採用した。

すべての統計解析にはEZR(R version 4.2.1)を使用した⁴⁾。統計処理はSpearmanの順位相関係数、Kruskal-Wallis検定、Wilcoxon符号付順位和検定、Fisherの正確検定、Mann-Whitney U検定を用いて解析を行い、 $p < 0.05$ をもって有意とした。

本研究は代表施設である久留米大学医学部倫理委員会(承認番号16275)および各共同研究施設の倫理委員会にて承認されている。

結 果

対象となった29例の全患者背景をTable 1に示す。

性別は、男児25例(86.2%)、女児4例(13.8%)と男児が多く、全例片側症例で、両側症例はなかった。患側は右側が1例(3.4%)のみで、他は全て左側だった。観察期間の中央値は66カ月だった。

初回発作年齢の中央値は5.3歳で、6例(20.7%)ではそれ以前に先天性水腎症と診断されていた。間欠性水腎症の診断時年齢の中央値は6.2歳で、初回発作から間欠性水腎症の診断までの期間の中央値は1カ月だったが、5例(17.2%)では初回発作時から診断まで1年以上を要していた。対象となった29例のうち、25例で観察期間中のいずれかの時期に腎シンチグラフィーが施行されていたが、このうち3例(12%)で有意な患側分腎機能の低下を認めていた。

観察期間中に手術が施行された症例は19例(65.5%)で、全例で腎盂形成術が施行されており、いずれの症例も術後は症状消失した。その他の10例(34.5%)は、症状が軽度または稀であったため手術は施行されず保存的に経過をみられていたが、観察期間中に全例で症状消失していた。手術が施行された19例の患者背景をTable 2に示す。手術が施行された19例と保存的に経過をみられた10例を、Pyeloplasty(PP)群とNon-pyeloplasty(NPP)群の2群にわけ、性別、発症時年齢、間欠性水腎症の診断時年齢、発症時の分腎機能比、発作時のJSPU分類について比較したが、いずれにおいても両群間で有意差は認めなかった(Table 3)。

初回発作から手術までの期間と初回発作年齢の相関をFig. 1に示す。統計学的に有意な相関は認められなかったが($p = 0.245$)、初回発作年齢が低いほど、初回発作から手術までの期間が長い傾向があった。初回発作から手術までの期間を、発作時のJSPU分類別、術中所見別

Table 1 Patient characteristics

n = 29			
Gender	Male	25	(86.2%)
	Female	4	(13.8%)
Laterality	Left	28	(96.6%)
	Right	1	(3.4%)
JSPU grade during symptomatic period	Grade 1	2	(6.9%)
	Grade 2	7	(24.1%)
	Grade 3	10	(34.5%)
	Grade 4	10	(34.5%)
Patients who had a diagnosis of hydronephrosis before onset		6	(20.7%)
Age at onset	5.3 years (3.3–9.7)		
Age at IH diagnosis	6.2 years (4.2–10)		
Time from onset to IH diagnosis	1 month (0–2.3)		
Follow-up period	66 months (41–92)		
Median (interquartile range)			
JSPU : Japanese Society for Pediatric Urology, IH : intermittent hydronephrosis			

Table 2 Characteristics of patients who underwent surgery

n = 19			
Age at surgery	7.8 years (6-11.5)		
Time from onset to surgery	23 months (7.5-39.8)		
JSPU grade during symptomatic period	Grade 1	0	—
	Grade 2	5	(26.3 %)
	Grade 3	6	(31.6 %)
	Grade 4	8	(42.1 %)
Operative findings	Ureteral polyps	3	(15.8 %)
	Crossing vessels	3	(15.8 %)
	Others	13	(68.4 %)
	Intrinsic stenosis	12	(63.2 %)
	Kinking	1	(5.2 %)

Median (interquartile range)

JSPU : Japanese Society for Pediatric Urology, IH : intermittent hydronephrosis

Table 3 Patient characteristics compared among patients with and without pyeloplasty

	PPn = 19	NPPn = 10	p
Gender (M/F)	17/2	8/2	0.592
Age at onset	5 years (3.2-8.5)	6.5 years (3-12)	0.773
Age at IH diagnosis	6 years (4-9)	6.5 years (3-12.3)	0.982
JSPU grade during symptomatic period	Grade 3 (2.5-4)	Grade 3 (2-3)	0.177
DRF at onset	46.4 % (43.7-48.7)	51.3 % (48.3-54.6)	0.142

Median (interquartile range)

PP : pyeloplasty, NPP : non-pyeloplasty, M : male, F : female, IH : intermittent hydronephrosis, JSPU : Japanese Society for Pediatric Urology, DRF : differential renal function

に比べたが、明らかな有意差は認めなかった ($p = 0.188$, $p = 0.693$) (Figs. 2, 3)。

術前後に腎シンチグラフィーが施行された5例において、術前後で分腎機能比に有意な差は認めなかった ($p = 0.812$)。

考 察

腎盂尿管移行部通過障害 (ureteropelvic junction obstruction : UPJO) による先天性水腎症のなかには、普段は水腎症による症状はなく、何らかの誘引で水腎症が出現あるいは増悪し、腹痛、吐気、嘔吐などの症状を生じるが、数時間～数日間の間に自然に症状は消失し、水腎症も改善していることがあり、このような状態は間欠性水腎症と呼ばれている。

間欠性水腎症の頻度については、Malek⁵⁾は過去10年間の腎盂形成術症例の3.4%に間欠性水腎症の症例と認めたと報告している。小児の間欠性水腎症は6～7歳の男児に多く、患側は左側に多いことが報告されており^{6,7)}、今回の我々の検討でも同様の結果だった。

小児の間欠性水腎症における患側分腎機能について、Chenら²⁾は143例の術前患側分腎機能比について平均 $41.03 \pm 10.59\%$ であったと報告している。今回の検

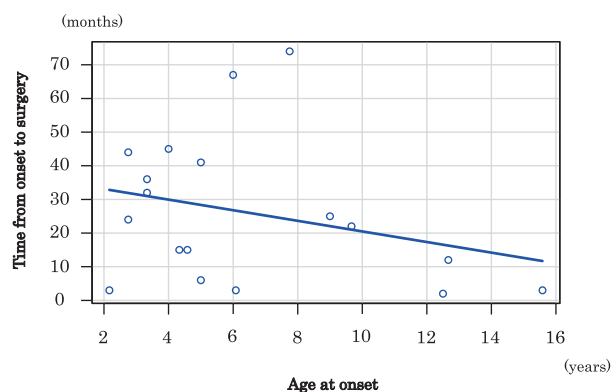


Fig. 1 Correlation between the time from onset to surgery and the age at onset: There was no significant correlation between them ($p = 0.245$). However, the time from onset to surgery tended to be longer in younger children. Spearman's rank correlation coefficient was used.

討では、発症後3カ月以内に腎シンチグラフィーが施行された14例の患側分腎機能比は平均 $47.7 \pm 7.0\%$ であり、Chenらの報告はこれよりも患側分腎機能比が低い結果となっているが、これは彼らの報告が、非発作時にも水腎症を呈する症候性UPJOの症例も含んでいる可能性があるためだと考えられる。観察期間中のいずれ

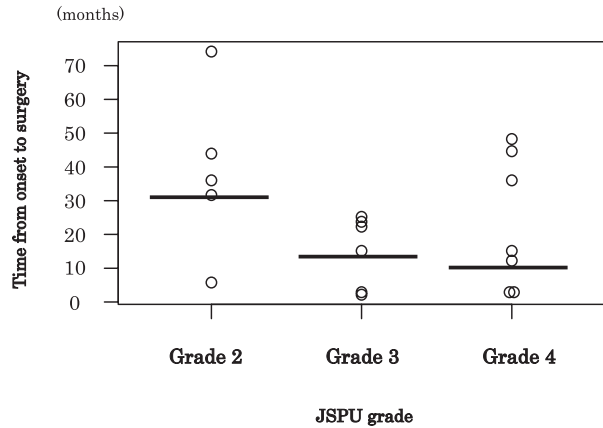


Fig. 2 The times from onset to surgery sorted by JSPU grades : Significant differences were not seen among them ($p = 0.188$). Kruskal-Wallis test was used.

かの時期の腎シンチグラフィーで、多くの症例が患側分腎機能を正常に保っている一方で、有意な低下を認めた症例を3例（12%）認めた。これら症例の検査施行時期は、それぞれ、初回発作以前、初回発作から1カ月後、7カ月後で、患側分腎機能比は、それぞれ、29.2%、27.4%、29.2%だった。初回発作前や発症後早期より患側分腎機能比の有意な低下を認め得ることから、間欠性水腎症における患側分腎機能の低下は、先天的な要因も影響している可能性があると考えられた。

間欠性水腎症の報告の多くは手術施行症例が対象となっているため、自然軽快の頻度についての報告はない。今回の検討では、10例（34%）が間欠性水腎症と診断されつつも、その後自然軽快し保存的に経過をみられていた。このことから、一部の症例では自然軽快する可能性が考えられるが、これについては、今後より長期的な予後の解明が待たれる。

今回の検討では、初回発作から間欠性水腎症の診断までの期間の中央値は1カ月だったが、診断まで1年以上かかった5例（17.2%）の初回発作年齢は平均 4.5 ± 1.9 歳だった。手術までの期間は、幼児で長期になっている傾向があり、症状が必ずしも疼痛ではなく軽度の場合もあることや、年齢的に症状をうまく訴えられないことが影響している可能性が考えられた。他に、発作時の腎盂前後径や発作の頻度、持続時間、閉塞機転などが影響している可能性も考えられるが、今回はそれらについて十分な検討を加えることはできなかった。術前後で患側分腎機能を評価し得た5例の初回発作年齢は2.2～12.5歳、手術までの期間は2～36カ月であったが、いずれの症例でも患側分腎機能の増悪は認めなかった。田島ら

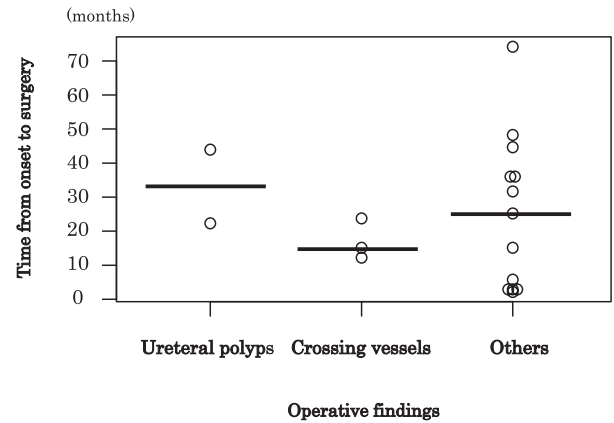


Fig. 3 The times from onset to surgery sorted by operative findings : Significant differences were not seen among them ($p = 0.693$). Kruskal-Wallis test was used.

⁸⁾ は、小児の間欠性水腎症症例と症候性 UPJO 症例の比較で、間欠性水腎症症例において初回発作から診断・手術までの期間が有意に長かったが、患側分腎機能は術前・術後ともに両群間で有意差を認めなかったと報告している。また、Chen ら²⁾ は、小児の間欠性水腎症における分腎機能低下の因子として、1回の疼痛発作の症状継続時間と発作時の腎盂前後径を挙げており、手術までの待機期間は術前の分腎機能低下と関連はなかったと報告している。小児の間欠性水腎症における患側分腎機能の長期予後については、今後のさらなる研究が待たれるが、現時点では、手術までの期間が長くなることによる患側分腎機能への悪影響は明らかではない。しかしながら、その間も疼痛発作を繰り返すこととなるため、より早期に診断し治療することが望ましいことは言うまでもない。今回の結果より、早期に診断、治療するためには、特に患者の年齢が低い場合は注意が必要であると考えられた。

結 語

小児間欠性水腎症では、診断確定に時間を要する症例は幼児に多く、年齢が低いほど発症から手術までの期間が長い傾向がある。間欠性水腎症は単に症状の程度が様々であるだけでなく、幼児では症状をうまく訴えることができない可能性があり注意が必要である。

文 献

- 1) Sparks, S. et al.: Evaluation of differential renal function and renographic patterns in patients with Dietl crisis. *J. Urol.* **189**: 684-689, 2013.
- 2) Chen, Z. et al.: The clinical manifestations of in-

- intermittent hydronephrosis and their relationship with renal function in pediatric patients. *J. Pediatr. Urol.* **16**: 458.e1-458.e6, 2020.
- 3) 島田憲次・他：周産期，乳児期に発見される腎盂尿管拡張の診断基準Ⅰ．超音波断層法を用いた腎盂・腎盂尿管拡張の記載法Ⅱ．利尿レノグラフィー実施のための標準プロトコール．*日小泌会誌*．**8**: 186-189, 1999.
- 4) Kanda, Y.: Investigation of the freely0available easy-to-use software “EZ R” (Easy R) for medical statistics. *Bone Marrow Transplant.* **48**: 452-458, 2013.
- 5) Malek, RS.: Intermittent hydronephrosis: the occult ureteropelvic obstruction. *J. Urol.* **130**: 863-866, 1983.
- 6) Tsai, J. D. et al.: Intermittent hydronephrosis secondary to ureteropelvic junction obstruction: clinical and imaging features. *Pediatrics.* **117**: 139-146, 2006.
- 7) 樋口彰宏・他：間欠性水腎症の臨床的検討．*日泌尿会誌*．**87**: 1145-1150, 1996.
- 8) 田島基史・他：間欠性水腎症の閉塞機転の検討．*日小泌会誌*．**31**: 62-65, 2022.

THE TIMING OF SURGICAL TREATMENT IN PEDIATRIC PATIENTS WITH INTERMITTENT HYDRONEPHROSIS

TOSHIHIKO ITESAKO, SEIJI TANAKA, TAKANORI YAMAGUCHI, YOSHITSUGU KAKU, MITSURU NOGUCHI, YASUFUMI OTSUKA, HIROMITSU MIMATA, HIDEKI SAKAI, TOSHIO KAMIMURA, TAKAO KONOMOTO, MASAYUKI NAKAGAWA AND MINORU MIYAZATO

Kyusyu Society for Pediatric Urology, Japan

TOSHIHIKO ITESAKO

Department of Adult and Pediatric Urology, Saiseikai Sendai Hospital, Kagoshima, Japan

MASAYUKI NAKAGAWA

Department of Urology, Kagoshima University Graduate School of Medical and Dental Sciences, Kagoshima, Japan

SEIJI TANAKA

Department of Pediatrics and Child Health, Kurume University School of Medicine, Fukuoka, Japan

TAKANORI YAMAGUCHI

Department of Urology, Fukuoka Children's Hospital, Fukuoka, Japan

YOSHITSUGU KAKU

Department of Pediatrics, Fukuoka Children's Hospital, Fukuoka, Japan

MITSURU NOGUCHI

Department of Urology, Saga University, Saga, Japan

YASUFUMI OTSUKA

Department of Pediatrics, Saga University, Saga, Japan

HIROMITSU MIMATA

Department of Urology, Oita University Faculty of Medicine, Oita, Japan

HIDEKI SAKAI

Department of Urology, Nagasaki University Graduate school of Biomedical Sciences, Nagasaki, Japan

TOSHIO KAMIMURA

Department of Urology, Faculty of Medicine, University of Miyazaki, Miyazaki, Japan

TAKAO KONOMOTO

Division of Pediatrics, Developmental and Urological-Reproductive Medicine,
Faculty of Medicine, University of Miyazaki, Miyazaki, Japan

MINORU MIYAZATO

Department of Urology, Graduate School of Medicine, University of the Ryukyus, Okinawa, Japan

Abstract :

[Objective] It is sometimes difficult to diagnose intermittent hydronephrosis (IH) especially in children and it may take a long time to treat IH. The purpose of this study was to determine the factors that influence the time from onset to surgery in cases of pediatric IH. [Patients and methods] We retrospectively reviewed the medical records of 29 pediatric patients with IH who had undergone treatment in 7 institutes affiliated to the Kyushu Society for Pediatric Urology (KSPU) from January 2007 to December 2016. [Results] Median age at onset and IH diagnosis was 5.3 and 6.2 years, respectively. The median time from onset to IH diagnosis was one month. However, the time from onset to diagnosis was more than one year in 5 patients (17.2%). Among 25 patients who underwent renal scintigraphy during the follow-up period, a significant decrease in differential renal function was noted in 3 patients (12%). From a total of 29 patients, 19 patients (65.5%) underwent surgical treatment. Median age at surgery was 7.8 years and median period from onset to surgery was 23 months. All 10 patients (34.5%) without surgery had symptoms that resolved spontaneously. The time from onset to surgery did not have any significant correlation with the age at onset ($p = 0.245$). However, it tended to be longer in younger children.

[Conclusions] The time from onset to surgery tended to be longer in younger patients with IH. We should keep in mind that such young children may possibly be unable to describe their symptoms.

(Nishinohon J. Urol. **85**: 190-195, 2023)

key words : intermittent hydronephrosis, children, ureteropelvic junction obstruction
