

## 先天性腎動静脈瘻の3例

近畿大学医学部泌尿器科学教室（主任：栗田 孝教授）

南 光二・金子 茂男・井口 正典・門脇 照雄  
秋山 隆弘・八竹 直・栗田 孝

大阪警察病院泌尿器科（主任：矢野久雄部長）

池 知 俊 典  
矢 野 久 雄CONGENITAL RENAL ARTERIOVENOUS  
FISTULA: REPORT OF THREE CASESKoji MINAMI, Shigeo KANEKO, Masanori IGUCHI,  
Teruo KADOWAKI, Takahiro AKIYAMA,  
Sunao YACHIKU and Takashi KURITA*From the Department of Urology, Kinki University, School of Medicine**(Director : Prof. T. Kurita, M. D.)*

Shunsuke IKEJI and Hisao YANO

*From the Department of Urology, Osaka Keisatsu Hospital**(Director : H. Yano, M. D.)*

Renal arteriovenous fistula is a rare condition and may be congenital or acquired. Most of the previously reported patients with renal arteriovenous fistulae were treated by nephrectomy. But, several patients were treated by partial nephrectomy, ligation of the feeding vessels, fistulectomy and endofistulorrhaphy. We report herein three cases of congenital renal arteriovenous fistula. Two cases were successfully treated by partial nephrectomy and one case did not undergo any operations because of the poor renal function.

From the review of literature, we could find and summarize 21 cases of congenital renal arteriovenous fistula which were treated by various renal preservative operations. A brief discussion was made on these 21 cases.

腎動静脈瘻は比較的まれな疾患であり、1928年に Varela によって第1例が報告されている。1960年代にはいつて血管造影の普及とともにその報告は年々増加し、現在までに約250例を数える<sup>1,2)</sup>。われわれは最近3例の先天性腎動静脈瘻を経験し、2例に腎部分切除術を施行し良好な結果を得たので報告するとともに、若干の文献的考察をおこなった。

## 症 例

症例1：38歳，女子。

主 訴：肉眼的血尿

家族歴・既往歴：特記すべきことはない。

現病歴：1975年11月14日、突然、凝血塊を混じた肉眼的血尿と右側腹部痛があり、大阪警察病院泌尿器科を受診した。受診時、膀胱タンポナーデの状態であったので、凝血除去後、膀胱鏡検査を施行したところ、両側尿管口よりの出血は認められず経過観察していたが、以後、肉眼的血尿続いたため精査目的にて入院した。

現 症：体格中等度、栄養やや不良。胸腹部の理学的所見には異常を認めず、血管性雑音も聴取されない。血圧 128/60 mmHg。

諸検査成績：赤血球数  $327 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，白血球数  $4,000/\text{mm}^3$ ，栓球数  $26 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，出血時間 4分30秒，凝固時間 4分30秒，プロトンビン時間 12.8秒，総蛋白 7.1 g/dl, A/G 1.23, Kunkel 6u, Co (R<sub>2</sub>), 総ビリルビン 0.19 mg/dl, GOT 38 U/L, GPT 17 U/L, AIP 3.5 KAU, BUN 12.5 mg/dl, uric acid 3.9 mg/dl, Na 138 mEq/L, K 4.0 mEq/L, Ca 4.03 mEq/L, Cl 103 mEq/L, P 3.68 mg/dl, CRP (6+), RA (-), ASLO (-). 心電図, 胸部レ線にて異常を認めない.

排泄性腎盂造影：右腎盂は軽度に拡大し，凝血塊によると思われる陰影欠損が認められる (Fig. 1).

選択的腎動脈造影：右腎上極部より中央部にかけて，多数の蛇行屈曲した小血管の集合が認められ，動脈相にてすでに右腎静脈が造影されている (Fig. 2).

以上の所見より，先天性右腎動静脈瘻と診断し，1975年12月12日，右腎部分切除術を施行した。右腎は外見上，形態，色調ともに正常で，thrillもなく，肉眼的に異常血管の判別は不可能であったが，術前の選択的腎動脈造影をもとに，上極部約 1/3 の切除をおこなった。

病理組織：切除部の組織像には，尿細管の拡大と尿細管細胞の平坦化を，また，硝子化した糸球体が散在し，虚血性の変化を認めた (Fig. 3).

術後経過は良好で，術後28日目に施行した右選択的腎動脈造影では，動静脈瘻は残存していない (Fig. 4).

症例 2：5歳，男子。

主 訴：肉眼的血尿

家族歴・既往歴：特記すべきことはない。

現病歴：1976年3月9日，突然，肉眼的血尿あり近医受診し，腎炎の診断にて止血剤の投与をうけ，肉眼的血尿は消失した。3月26日に再度肉眼的血尿あり，大阪警察病院泌尿器科を受診した。諸検査にて異常を認めないため経過観察していたところ，4月26日，5月6日にも肉眼的血尿を認め，左側腹部痛も加わったため精査目的にて入院した。

現 症：体格中等度，栄養良好。胸腹部の理学的所見に異常を認めず，血管性雑音も聴取されない。血圧，104/46 mmHg。

諸検査成績：赤血球数  $417 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，白血球数  $6,300/\text{mm}^3$ ，ヘモグロビン 13.4 g/dl，ヘマトクリット 47%，出血時間 4分30秒，凝固時間 5分30秒，プロトンビン時間 10.8秒，総蛋白 6.5 g/dl, A/G 1.2, GPT 9U/L, Kunkel 4U, 総ビリルビン 0.26 mg/dl, BUN 11.5 mg/dl, Na 139 mEq/L, K 4.5 mEq/L, Cl 105 mEq/L, CRP (-), RA (-), ASLO (-), LE (-). 心電図, 胸部レ線にて異常を認めない。

排泄性腎盂造影：両側腎盂腎杯に異常を認めない (Fig. 5).

腹部大動脈造影：左腎影がやや淡い以外に異常を認めない (Fig. 6).

左選択的腎動脈造影：左腎下極部に刷子様の造影剤の停滞を認め，すでに動脈相にて左腎静脈が造影されている。この変化は，高羽ら<sup>3)</sup>の分類による cirroid type とも aneurysmal type とも分類されえない像である (Fig. 7).

以上より，先天性左腎動静脈瘻と診断し，1976年5月21日，左腎部分切除術を施行した。左腎は形態正常であるが，腎下極部に限局して，腎表面に黄褐色にてやや硬い斑状の病変部が点在した。下極部を切開すると，腎実質内にも同様の病変が認められるため，これらの病変部を含めて腎下極部を切除した。

病理組織：切除部の組織像は，充血と，間質細胞の線維化を認め，陳旧性の硬塞性変化であった (Fig. 8).

術後経過は良好で，術後3ヵ月後の尿沈渣にて顕微鏡的血尿も認めない。

症例 3：28歳，女子。

主 訴：腎機能障害

家族歴・既往歴：特記すべきことはない。

現病歴：1976年2月13日，妊娠8.5ヵ月にて死産。出産は出血も少なく，とくに異常を認めなかったが，出産半月後より脱毛ひどく近医受診し，腎機能障害を指摘され，4月16日に某病院に入院した。入院後，BUNの上昇を認めるため，5月11日に当科へ転院した。入院中，腎生検は施行されていない。

現 症：体格中等度，栄養良好。顔面やや浮腫状を呈し，眼瞼結膜やや貧血様。胸腹部の理学的所見に異常を認めず，血管性雑音も聴取されない。血圧 128/88 mmHg。

諸検査成績：赤血球数  $316 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，白血球数  $7,600/\text{mm}^3$ ，ヘモグロビン 9.6 g/dl，ヘマトクリット 29.3%，総蛋白 7.3 g/dl, GOT 19 U/L, GPT 27U/L, 総ビリルビン 0.3 mg/dl, Na 142 mEq/L, K 3.6 mEq/L, P 7.0 mg/dl, Ca 7.5 mg/dl, PSP 15分値 2%, CRP (-), ASLO (-), RA (-). 心電図, 胸部レ線にて異常を認めない。

左選択的腎動脈造影：左腎中央部に蛇行屈曲せる多数の小血管の集合を認め，動脈相にてすでに腎静脈が造影されている (Fig. 9).

以上の所見より，先天性左腎動静脈瘻と考えたが，高度の腎機能障害があり，また，腎機能障害との因果関係が明らかでないため，保存的に経過観察中である。

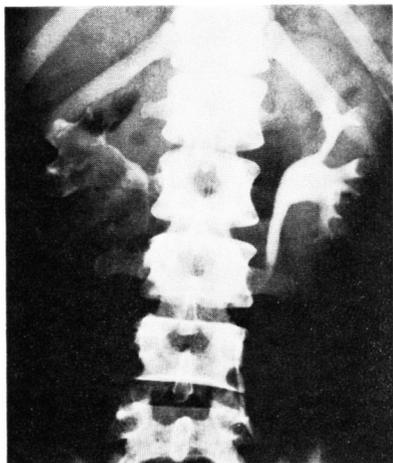


Fig. 1. Preoperative intravenous urogram. The filling defect of right renal collecting system, probably due to blood coagula (Case 1).

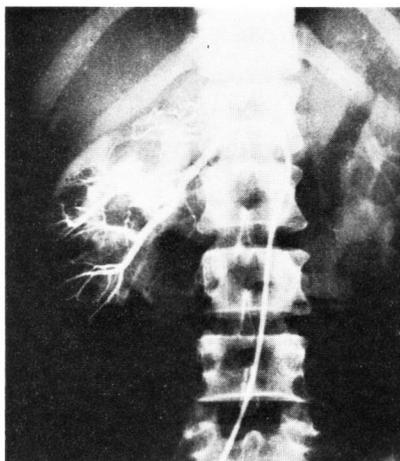


Fig. 2. Preoperative selective right renal arteriogram. Multiple small tortuous vessels of upper pole of right kidney and immediate filling of right renal vein (Case 1).



Fig. 3. Mild swelling of proximal tubuli with flattening of tubular epithelium and hyalinization of glomeruli suggesting renal ischemic change (H.E.  $\times 200$ ).

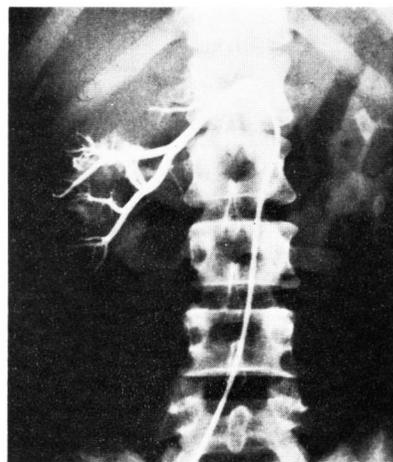


Fig. 4. Postoperative selective right renal arteriogram. No fistula (Case 1).

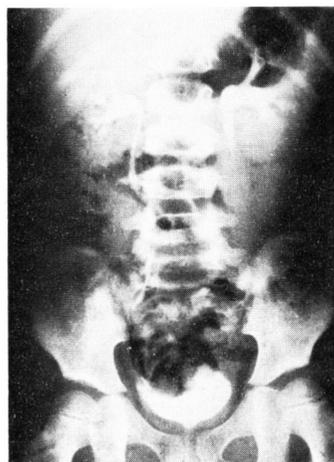


Fig. 5. Preoperative intravenous urogram. No abnormality of both renal collecting systems (Case 2).

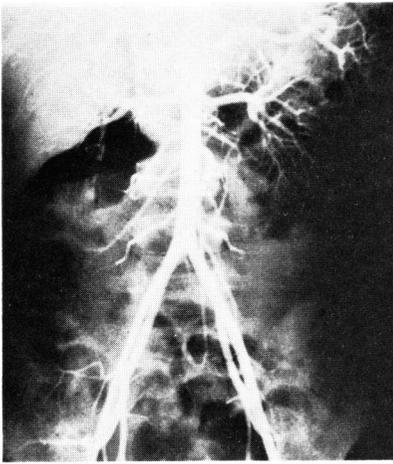


Fig. 6. Preoperative abdominal aortogram. Thin nephrogram of left kidney and otherwise almost normal (Case 2).

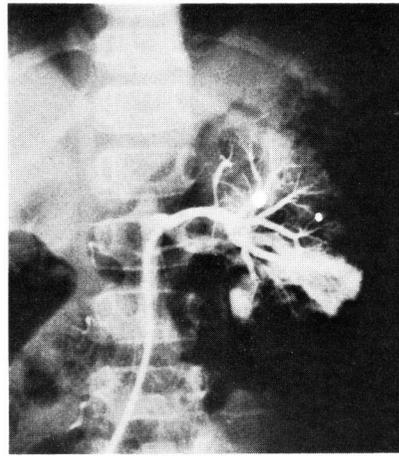


Fig. 7. Preoperative selective left renal arteriogram. Blush like appearance of lower half region of left kidney and immediate filling of left renal vein (Case 2).

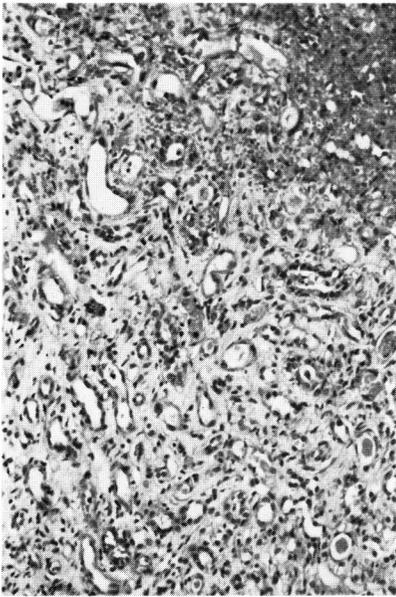


Fig. 8. Marked congestion and interstitial fibrosis suggesting infarction (H.E.  $\times 100$ ).

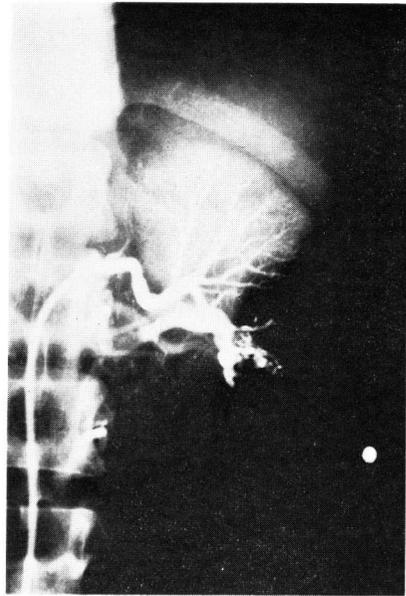


Fig. 9. Selective left renal arteriogram. Multiple small tortuous vessels of the middle region of left kidney and immediate filling of left renal vein (Case 3).

#### 本論文訂正

Table 1. Cardiomegary を Cardiomegaly に

Table 2. 最上段 Postperative を Postoperative に

Treatment の14行目 anstomcsis を anastomosis に

## 考 察

腎動静脈瘻は Maldonado ら<sup>4)</sup>によれば、先天性、特発性、後天性に分類され、先天性腎動静脈瘻は A-V malformation による動静脈瘻である。特発性腎動静脈瘻は、既存する動脈瘤が静脈と交通をもつようになり形成されるものとされているが、動脈瘤がいつごろ形成され静脈と交通をもつようになったかを判定することは事実上不可能であり、先天性腎動静脈瘻との鑑別は不可能に近い。高羽ら<sup>3)</sup>は腎血管レ線像の所見より、先天性腎動静脈瘻を cirroid type と aneurysmal type に分類しているが、特発性腎動静脈瘻は、高羽の分類による先天性腎動静脈瘻の aneurysmal type に属すると考えられる。後天性腎動静脈瘻は、明らかな原因が存在するもので、1) 外傷、2) 腫瘍、3) 炎症、4) 動脈硬化などが原因となる。とくに外傷では、刺傷が原因となることが多く、最近、腎生検による腎動静脈瘻が数多く報告されている<sup>5-9)</sup>。そのほか、腎部分切除術<sup>10)</sup>、腎切石術などが原因となる。腫瘍によるものは、腎癌の血管壁への浸潤破壊により発生するもので、前川<sup>11)</sup>の詳細な報告を筆頭に数多く報告されている<sup>12-15)</sup>。自験例で症例 1 と症例 3 は、血管レ線像上典型的な cirroid type の像を呈したために先天性としたが、症例 2 においては、cirroid type と aneurysmal type とも分類されえない像を呈した。しかし、外傷など後天性腎動静脈瘻の原因が全く認められなかったために、先天性腎動静脈瘻と考えた。本来、組織学的に A-V malformation を証明してはじめて先天性とすべきであろうが、临床上、とくに腎保存的に治療された症例においては組織学的な証明は困難であり、既往歴、腎血管レ線像などを中心に分類せざるをえない場合が多いと考える。

腎動静脈瘻の症状は、循環器症状と血尿とに大別される。循環器症状は、動脈血の短絡による静脈還流の増加に起因する心負荷と、瘻より末梢部の腎実質の虚血による Goldblatt phenomenon に起因する高血圧、および、その両者の結果としての心不全である。したがって、当然のことながら、瘻が大きい短絡量が多いほど循環器への影響は大きい。血尿は、動静脈瘻の尿路への破裂によるとされているが、明らかではない。そのほか、側腹部痛、腹部腫瘍、血管性雑音などがある。いままでに報告されている症状をまとめてみると Table 1 のごとくなるが、著明なのは、血尿の占める比率が増加していることである。われわれの 2 症例も肉眼的血尿を主訴とし、循環器症状は全く認められなかった。これは腎動静脈瘻の症状が変化したの

Table 1.

	Maldonado (1966)	Maekawa (1968)	McAlhany (1971) <sup>17)</sup>	Brunier (1975) <sup>16)</sup>
Abdominal bruit	60 (%)	57 (%)	74 (%)	48 (%)
Cardiomegaly	45	} 43	48	
Heart failure	39		43	37
Hypertension	48		50	50
Hematuria	29	29	33	59
Pain	24			35
Cardiac murmur	23	36		
Abdominal mass	13			9
Headache	11			

ではなく、血尿に対する本疾患への関心の高まりと、腎血管造影の普及により、特発性腎出血としてかたづけられていた症例のなかに、本疾患を発見することが多くなったためであろうと考えられる。

腎動静脈瘻の診断で重要なのは腎血管レ線像であり、拡張した小血管群の集合または動脈瘤様の血管の拡張と、動脈相における腎静脈の描出により診断される。そのほか、排泄性腎盂造影での cobblestone deformity of calyces, infundibula and pelvis<sup>18)</sup>をはじめとする種々の陰影欠損<sup>10, 19)</sup>、腎シンチスキャンにおける陰影欠損や分腎機能検査における左右差などが参考となる。ただ、自験例の症例 2 においては、腹部大動脈造影では、左腎下極部の腎影がやや淡いという所見のみで、選択的腎動脈造影を施行してはじめて診断しえた。選択的腎動脈造影の重要性を強調したい。

腎動静脈瘻は、循環器系への影響および血尿に対して外科的治療を要することが多いが、おもに腎摘除術が施行されており、限られた症例に腎部分切除術<sup>3, 10, 20-23)</sup>、瘻支配動脈の結紮<sup>10, 24-28)</sup>、瘻孔閉鎖術<sup>29, 30, 31)</sup>、瘻切除術<sup>32, 33)</sup>などの腎保存手術が施行されている。後天性腎動静脈瘻、とくに大きな動脈瘤の存在するもの、また、生検後の動静脈瘻に代表されるように、瘻孔が一カ所で支配動脈が術前にじゅうぶんに確認される場合は、腎保存手術が容易となる。また、最近になって、それらの症例に対し、区域動脈に挿入されたカテーテルを通して、凝血塊や gelatine sponge による瘻支配動脈の非観血的閉塞<sup>34, 35)</sup>が試みられ好成績を得ているのは興味ぶかい。一方、先天性腎動静脈瘻に限ると、腎保存手術によって治療された症例は意外に少

Table 2.

The First author	Year	Age & Sex	Complaint	Side	Localization	Type of fistula	Treatment	Postoperative renal arteriography
Edsman <sup>23)</sup>	1957	48.F	Flank pain	R	Lower	Aneurysmal	Ligature of an aneurysma and Partial resection of lower pole	unknown
Boijesen <sup>24)</sup>	1961	30.F	Hematuria	R	Lower	Cirroid	Resection of lower pole	unknown
Twigg <sup>25)</sup>	1962	50.F	Heart failure	L	Upper	Aneurysmal	Ligature of a feeding artery and Endofistulorrhaphy	unknown
Waterhouse <sup>26)</sup>	1964	29.F	Flank pain	R	Upper	Aneurysmal	Endofistulorrhaphy	Fistula closure
Palmer <sup>27)</sup>	1966	26.M	Hematuria	R	Lower	Cirroid	Fistulectomy with use of selective renal hypothermia	unknown
Malloy <sup>29)</sup>	1967	43.F	Hematuria	R	Lower	Cirroid	Ligature of feeding vessels and Resection of lower pole	no fistula
Riba <sup>28)</sup>	1967	51.F	Hypertension	R	Lower	Aneurysmal	A segmental resection after ligation and division of segmental artery	unknown
Tynes <sup>10)</sup>	1970	30.F	Dysuria	R	Middle	Cirroid	Ligature and removal of dilated vein and small branches Resection of renal ischemic zone	After 9 months, fistula was recurred and nephrectomized
	1970	56.F	Dysuria	L	Upper	Aneurysmal	Ligature of feeding artery and Dissection of dilated vein	unknown
				R	Upper	Aneurysmal	Partial nephrectomy of upper pole	unknown
	1970	35.F	Hematuria	R	Middle	Aneurysmal	Fistulectomy and anastomosis of middle branch to main artery	unknown
Tunner <sup>30)</sup>	1970	59.F	Flank pain	L	Middle	Aneurysmal	Ligature and division of feeding artery and vein	Fistula closure
Takaha <sup>3)</sup>	1972	39.F	Hematuria	L	Upper	Cirroid	Partial nephrectomy	no fistula
Schweitzer <sup>31)</sup>	1972	67.M	Hypertension	R	Upper	Aneurysmal	Partial nephrectomy with use of local renal hypothermia	unknown
Kostiner <sup>32)</sup>	1973	50.F	Abdominal bruit	L	Upper	Aneurysmal	Fistulectomy by small wedge resection of renal parenchyma with use of Doppler examination	no fistula
Wise <sup>33)</sup>	1974	52.M	Hematuria	R	Middle	Aneurysmal	Ligature of feeding artery Simultaneously, adenocarcinoma of the opposite kidney was diagnosed and nephrectomized	unknown
Ehrlich <sup>34)</sup>	1975	36.M	Hypertension	R	Middle	Aneurysmal	Endofistulorrhaphy	Fistula closure
Wong <sup>35)</sup>	1976	60.F	Hematuria	R	Lower	Cirroid	Ligature of feeding artery	Fistula remain
		60.M	Hematuria	R	Lower	Cirroid	Ligature of feeding artery	Fistula remain
Gibbons <sup>22)</sup>	1976	50.F	Hypertension	L	Middle	Aneurysmal	Ligature of feeding artery with use of Doppler flow meter and local renal hypothermia	Fistula closure
Minami	1976	38.F	Hematuria	R	Upper	Cirroid	Partial nephrectomy	no fistula
	1976	5.M	Hematuria	L	Lower	Cirroid	Partial nephrectomy	not performed

なく、Table 2 に示すごとく自験例を含めて21例にすぎない。このうち、自験例のごとく腎部分切除術を施行された症例は8例である。このように腎保存手術によって治療された症例が少ない原因として、先天性腎動静脈瘻には1) cirroid type が多く、瘻孔が多数存在し支配動脈が決定しにくい、2) cirroid type では全例瘻孔が腎内に存在する<sup>3)</sup>、3) 術中、瘻孔の位置確認が困難である、などがあげられる。最近 Gibbons<sup>28)</sup>は、先天性腎動静脈瘻に対し、腎冷却法と Doppler flow meter を利用し、瘻支配動脈の結紮を施行した症例を報告した。われわれは2症例に対し腎部分切除術を施行したが、とくに症例1においては、肉眼的に病巣部の確認ができなかったため、切除部の決定は非常に困難であった。今後、多方向よりの腎動脈造影による支配動脈のより詳細な把握、術中の Doppler flow meter による病巣部の確認、また、腎冷却法の利用による腎阻血時間の延長、さらには、bench surgery<sup>36)</sup>の本疾患への応用によって、腎保存手術の適応となる症例が増加するものと考えられる。

### 結 語

先天性腎動静脈瘻の3例を報告した。2例は腎血管レ線像上 cirroid type を呈し、1例は5歳で、いままでの報告例中最年少であるが、cirroid type ととも aneurysmal type ととも分類しえない像を呈した。2例は血尿を主訴とし、腎部分切除術により治療したが、1例は高度の腎機能障害を主訴とし、現在経過観察中である。腎動静脈瘻の分類、症状、診断、治療につき若干の文献的考察をおこなうとともに、腎保存手術を施行された先天性腎動静脈瘻の21症例につき検討した。

### 文 献

- 1) 松下一男・木下英親：泌尿紀要，22：13，1976。
- 2) O'Brien III, D. P. et al.: Surg. Gynec. Obstet., 139: 739, 1974.
- 3) 高羽 津・ほか，：日泌尿会誌，63：539，1972。
- 4) Maldonado, J. E. et al.: Amer. J. Med., 37: 499, 1964.
- 5) Papadopoulos, C. D. and Manoli, A.: Surgery, 62: 285, 1967.
- 6) Merkel, F. K. and Sako, Y.: Arch. Surg., 101: 438, 1970.
- 7) Leiter, E. et al.: New Eng. J. Med., 287: 971, 1972.
- 8) Cosgrove, M. D. et al.: J. Urol., 110: 632,

- 1973.
- 9) O'Connor, U. J., Jr. and Bergan, J. J.: J. Urol., 109: 934, 1973.
- 10) Tynes, W. V. et al.: J. Urol., 103: 692, 1970.
- 11) 前川正信，：日泌尿会誌，59：837，1968。
- 12) Kelly, D. G.: Brit. J. Urol., 39: 162, 1967.
- 13) Thomason, W. B. et al.: J. Urol., 108: 526, 1972.
- 14) Nelson, B. D. et al.: J. Urol., 109: 779, 1973.
- 15) Bass, E. M. and Lipper, M. H.: S. Afr. Med. J., 49: 1361, 1975.
- 16) Brunier, J. L. et al.: Ann. Radiol., 18: 559, 1975.
- 17) McAlhany, J. C. et al.: Amer. J. Surg., 122: 117, 1971.
- 18) Feinberg, S. B. and Goldberg, M. E.: Radiology, 81: 601, 1963.
- 19) Jonathan, B. P. O. et al.: J. Urol., 114: 607, 1975.
- 20) Edsman, G.: Acta Radiol., 155: 110, 1957.
- 21) Boijesen, E. and Köhler, R.: Acta Radiol., 57: 433, 1961.
- 22) Malloy, T. R. et al.: J. Urol., 98: 40, 1967.
- 23) Schweitzer, F. A. W.: Guy's Hosp. Rep., 121: 205, 1972.
- 24) Riba, L. W. and Simon, M. P.: J. Urol., 98: 293, 1967.
- 25) Tunner, W. S. et al.: J. Urol., 103: 286, 1970.
- 26) Wise, H. A. et al.: J. Urol., 112: 433, 1974.
- 27) ウン・シータン：臨泌，30：589，1976。
- 28) Gibbons, R. P. et al.: J. Urol., 115: 12, 1976.
- 29) Twigg, H. L. et al.: Amer. J. Roentgen., 88: 1148, 1962.
- 30) Waterhouse, K. et al.: J. Urol., 92: 256, 1964.
- 31) Ehrlich, R. M.: Arch. Surg., 110: 1195, 1975.
- 32) Palmer, J. M. and Connolly, J. E.: J. Urol., 96: 599, 1966.
- 33) Kostiner, A. I. and Burnett, L. L.: Radiology, 109: 531, 1973.
- 34) Meaney, T. F. and Chicatelli, P. D.: Cleveland Clin. Quart., 41: 33, 1974.
- 35) Goldman, M. L. et al.: Urology, 6: 386, 1975.
- 36) Gittes, R. F. and McCullough, D. L.: J. Urol., 113: 12, 1975.

(1976年12月9日受付)