

乳幼児にみられた腎動脈瘤による腎血管性高血圧症の1例

岩手医科大学医学部泌尿器科学教室（主任：大堀 勉教授）

佐	々	木	秀	平	
久	保		隆		
大	堀		勉		
谷	口		繁		（同大学小児科）
和	田	幸	子		（同大学小児科）

RENOVASCULAR HYPERTENSION IN AN INFANT
DUE TO RENAL ARTERY ANEURYSM

Shyuhei SASAKI, Takashi KUBO and Tsutomu OOHORI

*From the Department of Urology, Iwate Medical University School of Medicine**(Director: Prof. T. Oohori, M. D.)*

Shigeru TANIGUCHI and Yukiko WADA

From the Department of Pediatrics, Iwate Medical University School of Medicine

This is a report of renovascular hypertension seen in a boy of one-year and nine month-old having renal artery aneurysm.

The patient developed pyrexia and dyspnea at his age of one year and three months, when cardiomegaly was noted.

During the investigation of the heart disease, he was found to have hypertension. The results of various examinations such as plasma renin activity 7.20 ng/ml/h, plasma aldosterone 510pg/ml, IVP and renal arteriography led to the diagnosis of renovascular hypertension due to the renal artery aneurysm on the left side. Nephrectomy was chosen as a treatment.

Preoperative blood pressure was 210~180/120~100 mmHg. It started to decrease on the 15th postoperative day. At the present, one year postoperatively, the blood pressure is 110~100/70~60 mmHg and the boy is enjoying healthy life. This is the youngest patient of such condition reported in Japan.

緒 言

小児の高血圧症はまれであるが、とくに乳幼児のそれはきわめてまれである。その一因は、乳幼児の場合、血圧測定が routine におこなわれないために発見がおくれたり、見逃されたりするものと推察される。

教室の岩動ら¹⁾はさきに9歳男児における、後腹膜類皮嚢胞による腎血管性高血圧症例を報告している。最近私どもは腎動脈瘤による腎血管性高血圧症の1例を経験したが、本邦文献を渉猟した限りでは最年少で

あり、きわめてまれな症例と思われたので、ここにその概要を報告する。

症 例

患者：1歳9カ月、男子。

初診：1974年9月27日。

主訴：高血圧症の精査。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：生後1歳3カ月のとき、発熱、呼吸困難をきたし、某病院に入院し、精査加療をうけた結果、心

拡大が認められ心疾患を指摘された。そのご心疾患の精査を目的として、本学第3外科（心臓外科）に入院し、精査を受けたが、心拡大を惹起するような器質的病変は認められなかった。そして心拡大の原因は高血圧に起因すると思われたので、本学小児科を紹介され、転科入院した。小児科で精査の結果、血漿レニン活性値の上昇が認められ、さらに腎シンチグラム、排泄性腎盂造影により偏腎性高血圧症と診断されて、当科を紹介され転科入院した。

入院時現症：体格中等度（身長 87.5 cm, 体重 11.0 kg）、栄養良、眼瞼結膜に貧血なく、眼球結膜および皮膚に黄疸を認めない。胸部打聴診にて心濁音界の拡大と、両側上肺野に乾性ラ音を認め、さらに心尖部、左季肋部に収縮期雑音を認めた。腹部は平坦軟、肝、脾および両側腎は触知されない。腹部聴診にて腸雑音のほか、左腎動脈と思われる部位で、血管の収縮期雑音が聴取された。そのほか外性器および四肢には異常を認めない。

諸検査成績：最高血圧 210~180 mmHg, 最低血圧 120~100 mmHg で、左右差および心発作的血圧上昇は認められない。赤血球数 542×10^4 , 白血球数 8,600 でその百分率には異常を認めない。Ht 31%, Hb 10.1 g/dl, 出血時間 10分, 凝固時間 開始 3分 完結 20分。血液化学検査：総蛋白質 6.8 g/dl, 尿素窒素 14.2 mg/dl, 血液電解質 Na 139.0 mEq/L, K 4.5 mEq/L, Cl 101.1 mEq/L, Ca 4.3 mEq/L, GOT 32, GPT 13, LDH 534 各単位, 蛋白分画 Al 74.6%, G- α_1 2.7%, G- α_2 10.9%, G- β 8.2%, G- γ 3.6%, A/G 2.93. 血漿レニン活性値 7.20 ng/ml/h, 血漿アルドステロン値 510 pg/ml, 血清梅毒反応陰性。

尿検査所見：外観 淡黄色, 清, 比重 1.025, pH 6.0, 蛋白 0~10 mg/%, 糖陰性, 沈渣鏡上：赤血球、膿球は少数認められたが、上皮および円柱は認められなかった。尿中 VMA 陰性, 17-KS 734 γ /day, 17-OHCS 2300.4 γ /day。

心電図所見：電気軸 $+60^\circ$, V_1V_2 の R 波が低く, S 波が深く, V_5V_6 の R 波が高く, $R_{V_5} + S_{V_1} = 5.5$ mV で左室肥大の所見を認めた。

眼底所見には異常を認めなかった。

レ線所見：胸部レ線像では肺紋理の増強を認め、心陰影は右 II 弓, 左 II III IV 弓がそれぞれ拡張し、心胸比は 63.7% であった。腎部単純レ線像では、骨に異常なく、腎輪郭不明瞭であったが、腎部および尿管走行部に結石および石灰化陰影像を認めなかった。経静脈性腎盂造影法は、造影剤 10 cc を急速静注し、その後 1 分, 3 分, 5 分, 10 分, 15 分ごとに撮影した。Fig. 1

A はその 1 分像であるが、右腎盂、尿管に比して左腎盂、尿管像は淡影である。しかし Fig. 1 B の 15 分像では、この所見が反対となり、右に比して左腎盂、尿管像が濃影され、いわゆる paradoxical hyperconcentration を認めた。大動脈造影レ線像所見は Fig. 2 A のごとく、右側では腎動脈を 2 本認めたほかに異常所見を認めない。しかし左側では主幹動脈より 3 方向に分かれる分岐部の所が嚢状に拡張し、その末梢側は虚血状態を示していた。Fig. 2 B は静脈相であるが、左側では拡張部陰影は残存し、さらに末梢側にも小さな拡張像が散在し、ネフログラムが淡影で虚血状態を示していた。

腎シンチグラムでは Fig. 3 のごとく、右腎に比して左腎の取り込みが少なく、腎長軸の長さは右側 8 cm, 左側 7 cm であった。

以上の諸検査成績より、左腎血管性高血圧症と診断し、1974年11月6日左腎摘出術を施行した。

手術所見：全身麻酔のもとに、左傍腹直筋切開にて経腹膜的に腎に達した。腎の上、下極は正常の色調を呈していたが、中央部は陥凹し暗赤色であった。動脈拡張部のみの処置は困難と考えられたので、腎動静脈をできるだけ長く剝離したのちに、腎鉗子をかけ腎摘出術を施行した。

摘出標本肉眼的所見：大きさ $6.5 \times 3.5 \times 2.0$ cm, 重量 30 g, 表面凹凸不整で、とくに中央部は陥凹し暗赤色を呈していた。剖面は上、下極の皮、髄質の境界は明瞭であるが、中央部は暗赤色を呈し、皮、髄質の境界は不明瞭で、実質の萎縮が認められた。腎盂および尿管粘膜には異常を認めない。主幹動脈の分岐部は硬く拡張し、熊手状拡張を呈し、4~5本の血管がそれに連なっていた。拡張部の剖面は、白く粥状に肥厚し、それに連なる小血管内腔は狭小化を認め、肉眼的にも狭窄状態が確認できた (Fig. 4, 5)。

病理組織学的所見：腎動脈瘤の血管壁はほとんど結合織で血管壁構造をしめさなかった。動脈瘤に続く4つの大きな血管は、結合織の増殖著明で、うち3本の血管内腔はそのため閉塞し、そこに小血管が発育して再疎通をなしていた。しかしいずれも血管壁構造はほとんど認められなかった。以上の所見より、動脈そのものが、全体的に拡張し、あるいはその一部が瘤状に拡張し、そこに血栓が生じ、これが2次的に器質化したものと推察された。その血管末梢側の腎組織は、限局性かつクサビ状に変性または壊死に陥っていた (Fig. 6~8)。

術後経過：術後の経過は良好で創も1次的に治癒した。血圧は術後15日目ごろより下降し、最高血圧 130

～120 mmHg, 最低血圧 80～70 mmHg となった。術中測定した左腎静脈血 レニン活性値は 7.10 ng/ml/h, 同アルドステロン値は 1375 pg/ml であった。これに対し術後7日目の血漿レニン活性値は 0.3 ng/ml/h, 同アルドステロン値は 55 pg/ml と正常範囲に復していた。また胸部レ線像で心肥大も消失し, 術後55日目に退院した。術後1年の現在, 最高血圧 110～100 mmHg, 最低血圧 70～60 mmHg と正常の血圧を示し, 全く健康である (Fig. 9)。

総括ならびに考察

以上のごとく腎動脈瘤を認め renin-angiotensin 系の亢進による腎血管性高血圧症と診断され, 腎摘出術により治癒せしめ得た1歳9カ月男子の1例を報告した。

腎動脈瘤は欧米で Roupe²⁾ が1770年にはじめて報告して以来400例に近い報告がみられる。一方本邦では1961年勝目ら³⁾ の報告以来奥山ら⁴⁾ が50例を集計し

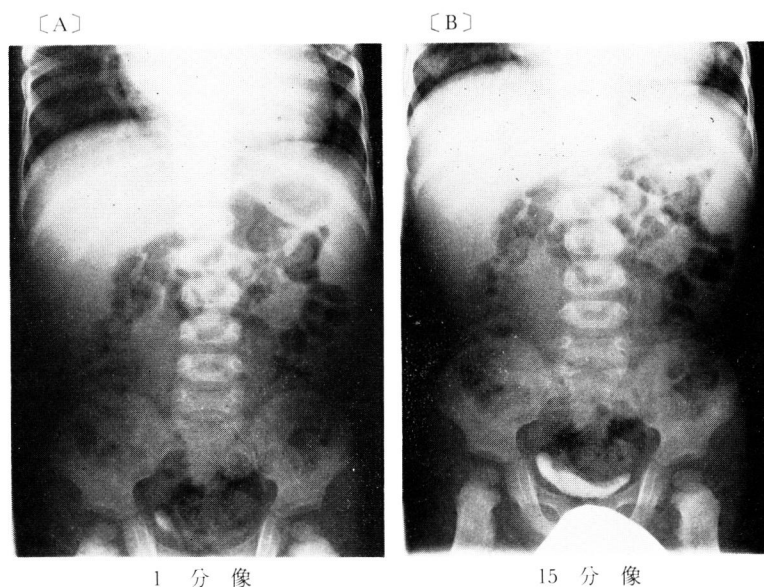


Fig. 1. 静脈性腎盂造影

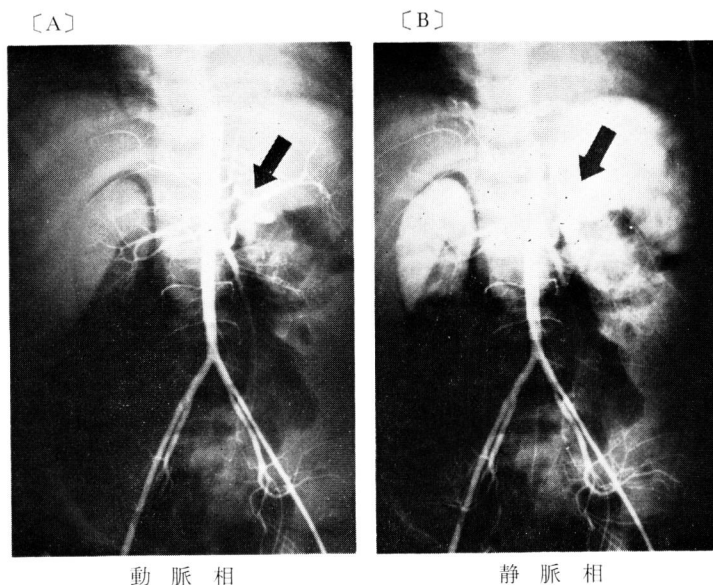


Fig. 2. 大動脈造影法

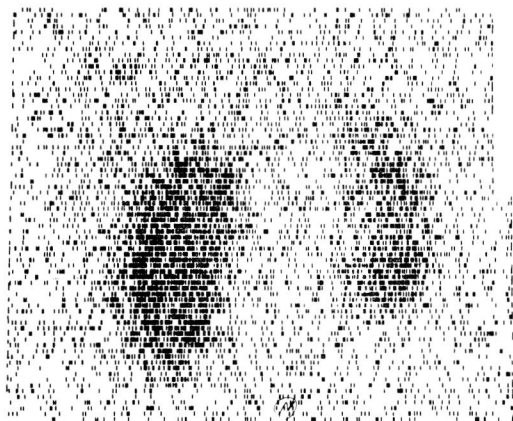


Fig. 3. 腎シンチグラム



Fig. 4. 摘出腎



Fig. 5. 腎動脈瘤の断面

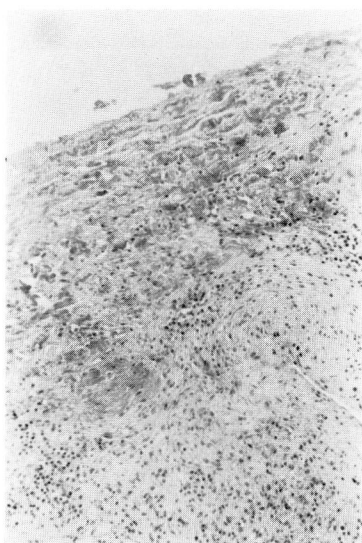


Fig. 6. 腎動脈瘤壁組織像



Fig. 7. 腎動脈瘤に連なる血管の横断面

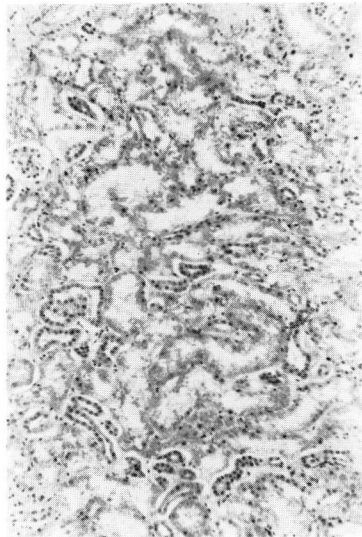
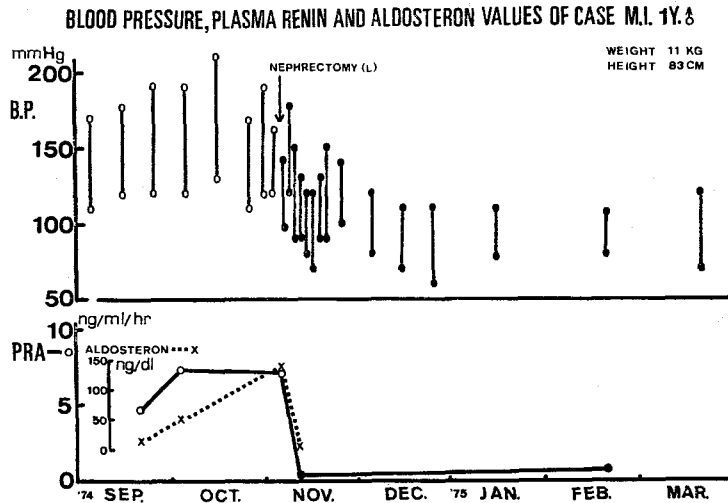


Fig. 8. 腎硬塞部の病理組織像



その上村ら⁹⁾が1例を追加しているに過ぎない。

小児例のみについてみると、勝目ら⁹⁾、河西ら⁶⁾、広中ら⁷⁾、相田ら⁸⁾、永田ら⁹⁾、新井ら¹⁰⁾、上村ら⁹⁾および自験例を加えた8例、15.3%であるが、私どもの症例は最年少であった (Table 1)。

腎動脈瘤は発生原因により真性と仮性とに分類されるが、真性のものは病変部血管壁の拡張であるのに対し、仮性のものは外傷などにより哆開した動脈壁から血液が溢流、貯留して発生したもので、血管壁は腫瘍の形成には関与していない。自験例は前述の病理組織

所見から真性動脈瘤と思われる。さらに真性動脈瘤はその型から、嚢状、紡錘状、狭窄後性、剝離性、動静脈瘤に分けられる。Table 3は本邦52例の集計であるが、嚢状が36例69.2%と圧倒的に多く、自験例も嚢状であった。

腎動脈瘤の発生頻度をみると、Abeshous¹¹⁾の報告では、全動脈瘤のうち1%前後であり、Howardら¹²⁾の剖検例68,819例では16例 (0.015%)、von Ronnen¹³⁾の11,000例では1例 (0.009%)であり、ほぼ1,000,000例に1例の割合で発見されている。しかし近年は、レ

Table 1. 小児腎動脈瘤本邦報告例

	報告者	年代	年齢	性別	患側	主 訴	部 位	石灰化	型 状	血 圧	
										術 前	術 後
1	勝見ら	1961	9	女	左	頭痛、嘔吐	主 幹	+	紡錘状	240/170	
2	河西ら	1968	15	男	左	高 血 圧	主 幹	-	Jet 型	204/120	140/80
3	広中ら	1969	15	男	左	頭痛、眼痛	腎内に多発	+	Jet 型	230/140	120/70
4	相田ら	1971	14	女	右	頭 痛	分 枝 部	+	嚢 状	180/120	正常化
5	永田ら	1972	11	女	右	高 血 圧	分 枝 部	-	嚢 状	160/138	110/60
6	新井ら	1973	14	女	右		分 枝 部		紡錘状	180/100	120/70
7	土村ら	1974	11	男	左	頭 痛	分 枝 部	+	嚢 状	210/120	110/60
8	自験例	1975	1	男	左	高 血 圧	分 枝 部	-	嚢 状	210/120	100/60

Table 2. 腎動脈瘤の本邦年齢分布

	0~10	11~20	21~30	31~40	41~50	51~60	61~70	71~80	計
男	1	5	4	4	4	1	2	2	23
女	1	3	4	3	4	6	8	0	29
計	2	8	8	7	8	7	10	2	

線診断技術の進歩と、腎血管性疾患に対する関心と相まって、臨床的に腎動脈瘤が発見される頻度は高くなってきた。すなわち Edsman¹⁴⁾ は腎動脈造影 965 施行例中 8 例 (0.75%) に、河西ら⁹⁾ は 213 施行例中 3 例 (1.4%) に認め、また新井ら¹⁰⁾ は腹部大動脈造影 469 施行例中 8 例 (1.7%) に発見しており、積極的に探究すればさらに発見率が増すものと思われた。

腎動脈瘤の性別についてみると、本邦例では男 23：女 29 とやや女性に多いのに対し、Garritano¹⁵⁾ によると男 88：女 73 (不明 14) で有意の差はないと述べている。

腎動脈瘤の年齢分布についてみると、Table 3 のごとく本邦例では年齢との関連性を認めないのに対し、Silvus¹⁶⁾、Ippolito, and LeVeen¹⁷⁾、Glass, and Uson¹⁸⁾ は 40～60 歳までのものが約 70% を占めていたと述べている。かように成績の相違をきたした原因として、欧米では高血圧症患者に対し、積極的に腎血管造影法を試みられていることに起因しているものと推察される。

Table 3. 腎動脈瘤の形状

囊 状 動 脈 瘤	36
紡 錘 状 動 脈 瘤	4
狭窄後性動脈瘤 (Jet 型動脈瘤)	8
剝 離 性 動 脈 瘤	1
不 明	3

腎動脈瘤の発生側についてみると、本邦例では右側 26 例、左側 24 例、両側 2 例であり、うち 1 側に多発性にみられたもの 6 例である。Garritano¹⁵⁾ によると右側 80 例、左側 81 例と左右差はなく、両側性、多発性が高頻度にみられたと述べている。

腎動脈瘤の発生部位についてみると、Table 4 のごとく、自験例のごとき腎動脈第 1 分岐部が 27 例と過半数を占めている。また欧米においても、腎動脈主幹部および第 1 分岐部が 50～70% を占め、本邦と同じ傾向がみられた。

Table 4. 腎動脈瘤の発生部位

腎 動 脈 幹 主 部	11
腎 動 脈 第 1 分 枝 部	27
腎 実 質 部	7
腎 実 質 内 多 発	2
腎動脈主幹部および腎実質内	4
そ の 他	1

腎動脈瘤の症状は Table 5 のごとく、高血圧が 71.1% を占めている。これに対して Abeshous¹¹⁾、Garri-

Table 5. 腎動脈瘤の症状

動 脈 瘤 壁 石 灰 化	22
高 血 圧	37
血 尿	7
腰 痛 お よ び 腹 痛	13
そ の 他	5

tano¹⁵⁾、Poutasse¹⁹⁾ の報告では 10～20% と低い頻度であるが、Emett and Witten²⁰⁾ は 55～75%、Mckiel ら²¹⁾ は 85% と本邦例と同様な頻度を認めている。さらに本邦小児例では全例が高血圧を認めていた。

この高血圧の発生機序はいまだ不明な点が多いが Sturum ら²²⁾ の説によると、1) 石灰化による腎動脈の狭小化、2) 血栓形成による腎血流量の減少、3) 血栓化した腎動脈瘤の圧迫または牽引による腎動脈の狭小化、4) 血栓による腎動脈硬塞などのため、腎虚血状態を招来し、renin-angiotensin 系を介して発症すると述べている。自験例は血栓の証明はなされていないが、腎動脈の狭小化、閉塞、腎硬塞などを認め、renin-angiotensin 系高血圧と考えられたが、レニン活性値と本症の病型、進行度さらに全身性動脈硬化症との関連は不明である。

次に自験例ではみられなかったが、動脈瘤壁の石灰化についてみると、本邦では 22 例 42.3% に、また小児例は 4 例 50% にみられた。一方欧米では Emmett²³⁾ 60%、Mckiel ら²¹⁾ 33%、Garritano¹⁵⁾ 37% と報告している。しかし診断的に石灰化陰影の価値はうすく、腎内外の石灰化を伴う他疾患との鑑別が必要である。

腎動脈瘤破裂についてみると、本邦では鈴木ら²⁴⁾ の妊婦腎動脈瘤破裂による死亡例の報告をみるのみである。これに対して欧米文献上では、1960 年までに約 30 例が報告されており、そのうちほとんどのものが動脈瘤壁の石灰化のみられない症例であった。Harrow and Slonne²⁵⁾ は動脈瘤壁に石灰化のみられなかった 100 症例のうち 24 例に破裂をみとめ、うち 8 例が妊婦であったと述べている。腎動脈瘤の破裂をきたした場合の予後は不良で、Popowniak ら²⁶⁾ によると、29 破裂例のうち 21 例が死亡している。以上のごとき腎動脈瘤破裂例より考察すると、石灰化のない症例は破裂の危険性を有し、さらに女性の場合は妊娠が大きな誘因となるので早急な治療を要するものと考え。反面、Emmett²³⁾ は直径 1.5 cm 以下で、石灰化を認め、増大傾向がなく、臨床的に症状のないものでは破裂の危険性がほとんどないと述べている。

腎動脈瘤の治療は、破裂の危険性のあるもの、高血圧を伴うもの、そのほか血尿、疼痛など臨床症状を伴

うものが、外科的処置の適応となるが、破裂の予後が不良なことより、石灰化があっても、また無症状であっても積極的に外科療法を適応すべきと考える。また本症の破裂の危険性とは別に高血圧が合併することが多いことから、Vaughan ら²⁷⁾、百瀬ら²⁸⁾の述べているごとく、診察時に高血圧がない場合でも、いずれ腎血管性高血圧へ発展することを考慮し、動脈瘤の大小、石灰化の有無にかかわらず積極的に外科的療法を適応すべきと考える。

本症に対する外科的療法も腎摘出術のみでなく、最近では腎動脈瘤頸部結紮術、動脈瘤縫縮術、動脈瘤切開術などが適応されるようになり、本邦でも動脈瘤切除術6例、腎自家移植術1例などの腎保存手術の報告がみられている。

最後に本症の予後であるが、腎動脈瘤の破裂を除いて、手術症例の死亡例は報告されていない。高血圧症の予後については、本邦28手術例の術後の成績で、不明5例を除き17例73.7%に血圧の正常化を認めている。またVaughan ら²⁷⁾は87.5%の血圧改善例を報告している。自験例を含めた本邦8例の小児例は術前いずれも高血圧を有し、患側腎摘出術により7例に血圧の改善を認めている。

以上の成績より腎動脈瘤による高血圧症は、手術療法によりかなり回復するので、積極的に外科的療法を施行すべきであると考えられる。

結 語

1歳9カ月の男子にみられた腎血管性高血圧症で、その原因が腎動脈瘤であった1例を報告した。本症例は1歳3カ月のとき、発熱と呼吸困難をきたし、精査により心拡大が認められ心疾患を疑われた。そのご心疾患の精査中高血圧を指摘された。諸検査により左腎動脈瘤による腎血管性高血圧症と診断し、左腎摘出術をおこなった。手術前は最高血圧210~180、最低血圧120~100 mmHgであったが、術後15日目ごろより下降し、術後1年の現在、最高血圧110~100、最低血圧70~60 mmHgで全く健康である。なお、本症例は私どもが調査した範囲では本邦最年少者であった。

文 献

- 1) 岩動 孝・山田行夫・大堀 勉：泌尿紀要，**19**：821，1973.
- 2) Roupe：Acta radiol.，**39**：385，1953.
- 3) 勝目三千人・藤村 誠・上戸文彦・後藤三雄・坂岡 博：日泌尿会誌，**52**：341，1961.
- 4) 奥山明彦・小出卓生・荒巻謙二・宮川光生：泌尿

紀要，**21**：101，1975.

- 5) 上村計夫・江藤耕作：西日泌尿，**36**：56，1974.
- 6) 河西宏信・前川正信・新 武三：泌尿紀要，**14**：389，1968.
- 7) 広中 弘・多喜良稔・柏木 崇・桐山寛夫・関谷智雄：臨泌，**23**：887，1969.
- 8) 相田光保・毛利虎一・吉永 馨・鳥飼龍生・杉田篤生・河村俊三・荒井 茂：内科，**28**：334，1971.
- 9) 永田 肇・八竹 直・森 義則・高橋香司・松田稔・柏井浩三：泌尿紀要，**19**：813，1973.
- 10) 新井元凱・杉田篤生・川村俊三・小津堅輔・石崎允・岡村知彦・鈴木騏一・福地総逸：日泌尿会誌，**64**：295，1973.
- 11) Abeshouse, B. S.: Urol. & Cutan. Rev., **55**: 451, 1951.
- 12) Howard, H. H., Suby, H. T. and Harbersen, J.: J. Urol., **45**：41, 1941.
- 13) von Ronnen, J. R.: Acta Radiol., **39**：385, 1953.
- 14) Edsman: 4) より引用.
- 15) Garritano, A. P.: Amer. J. Surg., **94**: 638, 1957.
- 16) Silvis, R. S., Hughes, W. F. and Holmes, F. H.: Amer. J. Surg., **91**：339, 1956.
- 17) Ippolito, J. J. and LeVeene, H. H.: J. Urol., **83**：10, 1960.
- 18) Glass, P. M. and Uson, A. C.: J. Urol., **98**：285, 1967.
- 19) Poutasse, E. E.: J. Urol., **95**：297, 1966.
- 20) Emmett, J. L. and Witten, M. M.: Clinical Urography, 3rd ed., P. 1640, W. B. Saunders Co., Philadelphia and London, 1971.
- 21) Mckiel, C. F., Graf, E. C. and Callahan, D. H.: J. Urol., **96**：593, 1966.
- 22) Sturum, A., Schulte-Brinkman, W., Wetzels, E.: Dtsch. Med. Ws. Chir., **92**：592, 1967.
- 23) Emmett, J. L.: Clinical Urography., 2nd ed., P. 1092, W. B. Saunders Co., Philadelphia and London, 1964.
- 24) 鈴木雅洲・野田起一郎・高橋郁夫・土田正義・諏訪紀夫・笹野伸昭・金 功・三浦 亮・高橋恒男・東岩井久：最新医学，**18**：2160，1963.
- 25) Harrow, B. R. and Slonne, J. A.: J. Urol., **81**：35, 1959.
- 26) Popowniak, K. L., Gifford, R. W., Straffon, R. A., Meaney, T. F. and McCormac, L. J.: Postgrad. Med., **40**：250, 1960.

- 27) Vaughan, J.J., Barry, W. F. Jr., Jeffords, D. L.
and Johnsrude, I. S. : Radiology., **99** : 287,
1971.
- 28) 百瀬剛一・遠藤博志：日泌尿会誌, **58**: 122, 1967.
(1975年12月 8 日受付)