

腎動静脈瘻の1例

済生会中央病院泌尿器科

松下 一 男

木下 英 親

RENAL ARTERIOVENOUS FISTULA: REPORT OF A CASE
AND REVIEW OF THE JAPANESE LITERATURE

Kazuo MATSUSHITA and Hidechika KINOSHITA

From the Department of Urology, Saiseikai Central Hospital, Tokyo, Japan

A 29-year-old woman entered the hospital because of hematuria.

She had been well until one month previously when a total, gross hematuria occurred with right flank pain. The day before entry the hematuria became more severe and urinary retention developed.

The blood pressure was 120/60. The lungs and heart were normal. A distended bladder was felt in the lower abdomen. No bruit was heard. The right costovertebral angle was tender on palpation.

The blood examinations were normal except for a low hematocrit (20.5%).

A large amount of blood clots were evacuated of the bladder. On cystoscopy bloody stream was seen effluxing from the right ureteral orifice. The IVP showed no function of the right kidney. The contralateral kidney was normal. The RP demonstrated multiple filling defects in the renal pelvis and ureter (Fig. 1). The renal arteriogram disclosed a cluster of small, tortuous, dilated vessels in the lower half of the right kidney with early filling of the inferior vena cava (Fig. 2).

A diagnosis of renal arteriovenous fistula was made and nephrectomy was performed. Recovery was uneventful and the patient was discharged on the 43rd hospital day.

The Technovit injected specimen established the diagnosis of arteriovenous fistula (Fig. 3). Histologic examination revealed angiomatous malformation (Fig. 4).

This is the 37th case of renal arteriovenous fistula in Japan. Etiology was discussed and the Japanese literature was reviewed (Table. 1).

緒 言

腎動静脈瘻は腎茎部に生ずる大きなものから、腎内の小動脈領域にできる小さなものまで、その発生部位や成因によってさまざまな像を呈する。しかし、その診断は適確な腎動脈造影によってしか得られないため、もあってこれまでの報告例は少なく、欧米では220数例、本邦では現在までに36例を数えるにすぎない^{1)~26)}。

腎動静脈瘻の成因については外傷、腎の針生検、腫瘍など原因の明らかなものは別としてまだじゅうぶん

に解明されているとはいえず、とくに腎内動脈瘤、血管腫, congenital vascular/arteriovenous/angiomatous malformationなどの名称でいわれる先天的な異常血管との関連については種々の見解があって、そのため分類方法にも報告者により相違がみられる。

以下に先天性腎動静脈瘻の自験例を報告するとともに本邦症例を成因別、レ線所見別に分類し相互の関連について検討してみた。

症 例

患者：29歳 未婚女性（48-4283）

職業：美容師

初診：1973年8月9日

主訴：血尿

病歴：生来健康であったが、来院6日前になんら誘因なく、無痛性血尿の排出を数回みた。3日後には右側腹痛とともに凝血の排出があり、排尿困難をきたして近医で導尿を受けた。血尿は持続し、さらに3日後には尿閉となり当院へ紹介された。膀胱内凝血除去をおこない止血剤を投与して経過をみていたところ7日後に右側腹痛が再発したが肉眼的血尿はなかった。そ

れから9日後に強度の血尿をふたたびきたし、排尿が凝血塊のため困難となった。当院への途次、失神して倒れ救急車で搬送され入院した。

入院後経過：体温 37.6°C、血圧 120/60、脈搏 84整下腹部に充満した膀胱を触れるが他に腫瘤や thrill を触れず、血管雑音も聴取されない。右 CVA に叩打痛あるも圧痛は著明ではない。頸部静脈の怒張や四肢浮腫もみられない。膀胱タンポナーデの状態であったので、入院後直ちに凝血除去術をおこない、このとき、膀胱鏡で右腎出血を確認した。

一般検査成績：Ht 20.5%、白血球数 9600 で百分率は N77%、B 0%、E 2%、L11%、M10%、栓球数 246000、出血時間 3 分、凝固時間 6 分、prothrombin

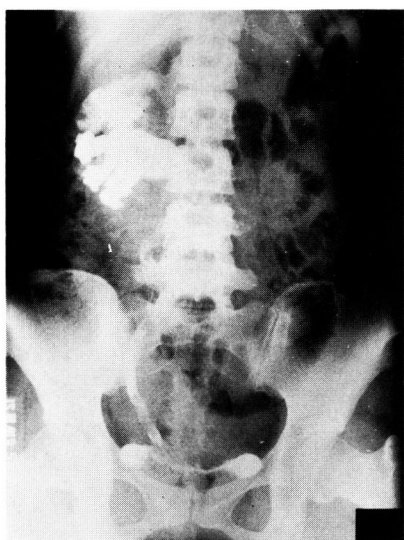


Fig. 1. RP demonstrates moderate hydronephrosis and ureterectasis with multiple filling defects.



Fig. 2. Renal arteriogram showing a cluster of small tortuous vessels in lower half of kidney with early filling of vena cava.

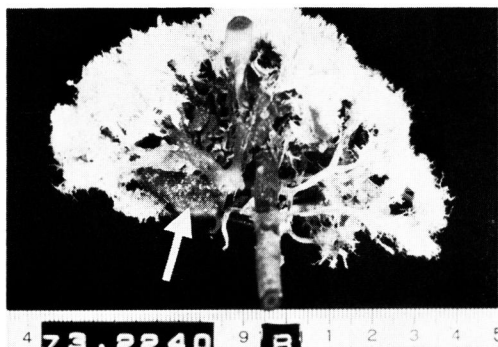


Fig. 3. Technovit injected specimen, arrow showing site of arteriovenous fistula.

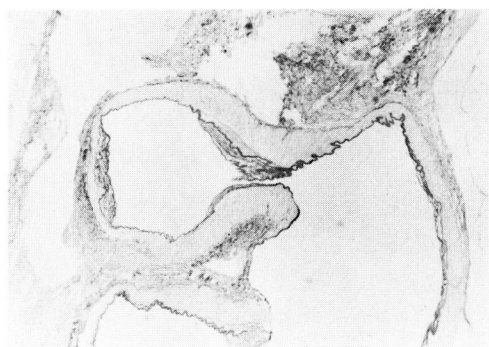


Fig. 4. Histologic section of arteriovenous fistula. Note attenuation of wall structure of vessels suggesting of congenital angiomatous malformation.

時間11.7秒で100%, fibrinogen 540 mg/dl, euglobulin 溶解時間6時間以上, 黄疸指数3単位, SGOT 14単位, SGPT 5単位, alkaline phosphatase 5.4 KA, 総蛋白 7.0 g/dl, A/G 1.21, 蛋白分画 正常, 血清 Na 137 mEq/L, K 3.7 mEq/L, Cl 100 mEq/L, HCO₃ 25.2 mEq/L, Ca 4.6 mEq/L, BUN 8.4 mg/dl, 血清 creatinine 0.9 mg/dl. 尿は血尿で蛋白(+),

円柱は認めず, 一般細菌, 結核菌培養ともに陰性であった. 胸部 XP, EKG も正常で, 強い血尿とそれによる貧血以外にとくに一般検査成績に異常を認めない.

IVP では左腎は正常, 右腎より造影剤の排泄がみられなかったので RP をおこない, 腎盂から尿管下部にかけて血塊によると思われる陰影欠損像を得た

Table 1. Cases of renal arteriovenous fistula reported in the Japanese literature.

	報告者および報告年度	症例の年齢と性別	臨床症状			治療	成 因	文献番号
			血 尿	高 血 圧	血管雑音			
1	長谷川真常・ほか 1964	20 F					腎 針 生 検	1
2	伊東 一元・ほか 1964	29 F	Yes	No	No	腎 摘	刺 傷	2
3	柴生田 豊・ほか 1966	22 M			Yes	瘻 閉 鎖		3
4	永田 正夫・ほか 1966	54 F	Yes			腎 摘		4
5	豊田 泰・ほか 1966	54 M		No		部分腎摘	大 動 脈 穿 刺	5
6	前川 正信・ほか 1968	48 M	Yes	No	No	腎 摘	腎 癌	6
7	大原 到・ほか 1969	57 M		Yes	Yes	腎 摘	解離性大動脈瘤	7
8	下江 庄司・ほか 1969	39 F					腎 針 生 検	8
9	徳原 正洋・ほか 1969	62 F	Yes	No	No	腎 摘	腎 癌	9
10	小松 格一・ほか 1970	35 F	Yes	Yes	No			10
11	久保 隆・ほか 1970	52 F	Yes	No	No	腎尿管摘	炎 症	11
12	久保 隆・ほか 1970	50 F					炎 症 (TB)	11
13	田村 瑞穂・ほか 1970	35 F		Yes	No			12
14	田村 瑞穂・ほか 1970	22 F		Yes	No			12
15	田村 瑞穂・ほか 1970	42 F		Yes				12
16	宮下 厚・ほか 1971	21 M	Yes	No	No			13
17	中西 純造・ほか 1971	36 M	Yes	No	Yes	腎 摘	刺 傷	14
18	渡辺 俊一・ほか 1971	35 M	Yes	No	No	腎 摘	AVM	15
19	渡辺 俊一・ほか 1971	38 F	Yes	No	No		AVM	15
20	神崎 頼啓・ほか 1971	38 M	Yes			腎 摘		16
21	黒田 清輝・ほか 1971	38 M		Yes		腎 摘	RAA	17
22	奥田 治爾・ほか 1972	54 F	No	No	Yes	腎 摘	後	18
23	村上 秀一・ほか 1972	24 M		Yes	No	腎 針 生 検		19
24	樋口 武彦・ほか 1972	73 M		Yes	Yes	腎 摘	後	20
25	岸川 高・ほか 1972	46 F		Yes			炎 症 (TB)	21
26	岸川 高・ほか 1972	36 M		Yes				21
27	上畠 拓・ほか 1972	38 M		Yes	Yes	腎 摘	AVM	22
28	高羽 津・ほか 1972	34 M	Yes	No	No	腎 摘	AVM	23
29	高羽 津・ほか 1972	32 M	Yes	No	No	腎 摘	AVM	23
30	高羽 津・ほか 1972	39 F	Yes	No	No	部分腎摘	AVM	23
31	柳橋 次雄・ほか 1973	24 M		Yes	No		腎 針 生 検	24
32	新 正浩・ほか 1973	54 F	No	No	Yes			25
33	森田 喜朗・ほか 1973	45 F	Yes			腎 摘	AVM	26
34	松浦 謙一・ほか 1973	21 F	Yes			腎 摘		27
35	宮川 征男・ほか 1973	59 F	Yes	Yes		腎 摘	AVM	28
36	本村 勝昭・ほか 1974	30 F	Yes	No	No			29
37	自 験 例 1974	29 F	Yes	No	No	腎 摘	AVM	

F=female, M=male. AVM=arteriovenous malformation, RAA=renal arterial aneurysm.

(Fig. 1).

腎動脈造影では2秒目のフィルムにすでに下大静脈のはっきり造影されており、腎の中央部には屈曲蛇行した小血管の集合像があって、それより末梢の血管へはじゅうぶんに造影剤が到達していない (Fig. 2). 左腎の血管像は正常であった。これにより、腎腫瘍を全く否定したわけではなかったが、いちおう、腎動静脈瘻の血管の一部が腎杯内へ破れて出血を起こしたものと診断した。

入院後3週間にわたり強い血尿は断続的に再発し、留置カテーテルがしばしば閉塞し、輸血総量は1,000 ccに達したので腎摘出術に踏みきった。腎はやや腫大し、うっ血性で腎周囲被膜と軽度の癒着があり、腎盂および上部尿管は中等度に拡張していた。腎の前面中央部には強い拍動と thrill を触れた。腎動脈および静脈を別々に結紮切断し、通常の腎摘出術をおこなった。術後経過は良好で血尿は消失し現在は健康な生活を送っている。

病理所見：摘出腎には直ちに Technovit 樹脂* を血管より注入し血管樹の鋳型標本を作製した (Fig. 3). これによって動静脈瘻が葉間動脈の領域にあることを確認した。組織標本でも同部の動脈は著明に拡大、屈曲蛇行しており、弾性板のき裂、層構造の乱れがあり、また、壁構成の不完全な一見静脈様の血管が分岐するところもところどころにみられ、いわゆる angiomatic malformation と考えられる所見であった。間質にはびまん性に線維化と細胞浸潤があり、尿細管にも細胞浸潤がみられ腎盂腎炎の所見を呈していた (Fig. 4).

考 察

腎動静脈瘻の最初の報告は1928年、Varela によってなされたとされている。これは剖検所見と生前の腹部血管雑音により診断されたものである。その後1950年代にはいって大動脈造影や腎動脈造影が普及するにつれて報告例が増し、1966年 Maldonado らは86例³⁰⁾、1971年 McAlhany らは118例³¹⁾、1974年 O'Brien らは225例をそれぞれ文献上から集計している³²⁾。本邦では1974年までに36例の報告がある (Table 1)。最初の報告が現われたのが1963年で、それ以前に腎動静脈瘻の病名で報告された症例は見当たらないが、特発性腎出血として報告された症例や腎出血を伴った腎海綿状血管腫あるいは腎内動脈瘤の報告例の中には、血管造影がおこなわれていれば現在では腎動静脈瘻と診断さ

れた例もいくつか含まれていたものと考えられる。

腎動静脈瘻が当初、注目されたのは腹部の異常血管雑音や振戦、腎血管性高血圧や心不全の一因としてであったが、その腎動脈造影が普及するにつれて腎出血の一因として診断されることが多くなり、さらに最近では外傷、とりわけ刺傷や腎の針生検後に発生するものが注目されている²⁴⁾。本邦でも腎動静脈瘻のいちばん最初の報告と思われるものは腎の針生検によるものである¹⁾。

腎動静脈瘻の成因や分類に関しては、これまでに幾多の議論がなされてきたが、いまだに確定的なものはない。従来、先天性腎動静脈瘻については2つの考え方があって、ひとつは先天的にあった動静脈瘻が徐々に大きくなった末になんらかの臨床症状を発症するというものであり³³⁾、もうひとつは先天性の腎動脈瘤が拡張して静脈に破れて瘻を形成するという考え方である³³⁾。しかし、現在ではレ線所見が重視され、屈曲蛇行した多数の小血管と瘻がみられるもの (cirroid type or appearance) は先天性とし、通常、比較的大きな瘻がひとつしかみられないものを、動脈瘤がなんらかの原因で静脈内に破れたものとみなして特発性とするのが支配的な考え方となっている³¹⁾。本邦では高羽らにより cirroid type と aneurysmal type に関して詳細な考察がなされている²³⁾。一方、しかし、Maldonado らは組織所見を考慮に入れて、先天性のものは病理学的に angiomatic malformation が証明された症例に限るべきであると述べている³⁰⁾。このように、腎動静脈瘻の分類に関しては成因と形態を同時に考慮すると多少の混乱をまねがれず、とくに動脈瘤様の所見がある場合に先天性とするか後天性とするか判断に迷うことが多いと思われる。そこで著者は Maldonado らの考え方に準拠して別表のような成因別分類を作り本邦症例を分類してみた (Table 2)。成因に関してとくに記載がなく腎動脈造影だけで診断されたものはすべて特発性に分類した。また、動脈瘤様の所見があっても組織所見に angiomatic malformation の記載がないものは後天性の動脈瘤破裂の項に分類した。このように分類してみると本邦報告例の約3分の1は成因不明の特発性ということになる。もっともこの中には腎動脈造影だけの所見で診断された症例が5例含まれている。

現在では腎動静脈瘻の診断は腎動脈の連続撮影により決定されるが、本邦の初期の報告例の中には摘出した腎の局所解剖的所見によって診断されたものもある⁴⁾。腎動静脈瘻の血管造影所見は Boijesen の報告以来別表 (Table 3) のように2大別するのが通例であ

* Kurzer & Co. Westgermany

Table 2. Classification of renal arteriovenous fistula.

Classification	Number
Congenital	8
Acquired traumatic	
Stab wound	3
Biopsy	4
Nephrectomy	2
Neoplastic	2
Inflammatory	3
Aneurysmal	4
Idiopathic	11

Table 3. Arteriographic findings of renal arteriovenous fistula.

	Number
1. Multiple small tortuous channels (cirroid appearance)	17
2. Larger fewer vessels with early filling of veins and vena cava	17

る³⁴⁾。本邦症例のうち腎動脈造影がおこなわれている35例について分類可能なものを分類して表に示しているが、各所見ともほぼ半数ずつの同数である。なお、炎症による腎動脈静瘻として報告された3例のうち、結核によるもの1例と腎盂腎炎によるもの1例¹¹⁾は瘻が小さいという記載があるのみでいずれにも分類しえなかった。

このふたつの分類法によって成因とレ線所見との関連をみてみると、腎外傷（刺傷、針生換）、腎手術、動脈瘤破裂によるものは瘻血管が大きく、先天性ないし特発性と分類されたものは瘻血管が小さくても数が多いといえることができる（先天性および特発性腎動脈静瘻19例のうち17例が Table 3 の1に分類される）。そしてさらに臨床症状をも考え合わせると、瘻血管の大きなものでは、おそらくシャント血液量が多いために心肥大、血管雑音あるいは thrill、高血圧などの循環器系の障害が主要症状となっている例が多い。もっとも腎動脈静瘻と高血圧との関係は腎虚血が一因にあげられてはいるものの、まだじゅうぶんに明らかにはされておらず、本邦症例中高血圧を伴っていたものの12例のうち血漿レニン活性上昇の記載があるのは2例だけである^{12,23)}。瘻血管の小さなものでは腎出血が主症状となる場合が多く、これは動脈静瘻が腎実質内でも腎杯に近いところに概して多いためと思われる。自験例も膀胱タンポナーデを何回も起こすほどの強い

血尿が主訴であったが、同様の主訴は本邦症例中他に15例にみられる。

腎動脈静瘻の治療としては循環器系症状や血尿が強い場合、これまではほとんどが腎摘出術か腎部分切除術がおこなわれてきたが、最近の欧米の文献には瘻血管の結紮によって治癒せしめた報告が散見される³⁵⁾。本邦ではこれまでに結紮を試みたという報告が1例あるだけで成功例はまだないようである³⁾。

結 語

1. 先天性腎動脈静瘻の1例を報告した。これは本邦では37例目に相当する。
2. 本邦37症例を成因別、腎動脈造影所見別に分類し、相互の関連について考察した。

本文の主旨は第4回日本腎臓学会東部部会で演述した。

文 献

- 1) 長谷川真常・ほか：日泌尿会誌，55：319，1964（学会報告）。
- 2) 伊東一元・ほか：日泌尿会誌，55：1092，1964（学会報告）。
- 3) 柴生田豊・ほか：日本循環器学会誌，30：957，1966（学会報告）。
- 4) 永田正夫・ほか：日泌尿会誌，57：644，1966（学会報告）。同じく臨床皮泌，20：887，1966。
- 5) 豊田 泰・ほか：日泌尿会誌，57：1263，1966（学会報告）。同じく 臨泌，21：308，1967。
- 6) 前川正信：日泌尿会誌，59：837，1968。
- 7) 大原 到・ほか：外科，31：941，1969。
- 8) 下江庄司・ほか：日泌尿会誌，60：808，1969（学会報告）。
- 9) 徳原正洋：臨泌，23：712，1969。
- 10) 小松格一・ほか：日本臨床，28：2887，1970。
- 11) 久保 隆・ほか：日泌尿会誌，61：737，1970（学会報告）。
- 12) 田村瑞穂・ほか：日泌尿会誌，61：420，1970。
- 13) 宮下 厚・ほか：日泌尿会誌，62：268，1971（学会報告）。
- 14) 中西純造・ほか：日泌尿会誌，62：654，1971（学会報告）。
- 15) 渡辺俊一・ほか：臨床放射線，16：137，1971。
- 16) 神崎頼啓・ほか：西日泌尿，33：631，1971（学会報告）。
- 17) 黒田清輝・ほか：日泌尿会誌，62：908，1971（学会報告）。
- 18) 奥田洽爾・ほか：日本内科学会誌，61：93，1972

- (学会報告).
- 19) 村上秀一・ほか：弘前医学，**23**：577, 1972.
- 20) 樋口武彦・ほか：日本医学放射線学会誌，**32**：240, 1972.
- 21) 岸川 高・ほか：日本医学放射線学会誌，**32**：481, 1972.
- 22) 上畠 拓・ほか：日本内科学会誌，**61**：404, 1972.
- 23) 高羽 津・ほか：日泌尿会誌，**63**：539, 1972.
- 24) 柳橋次雄・ほか：診断と治療，**61**：685, 1973.
- 25) 新 正浩・ほか：臨床放射線，**18**：173, 1973.
- 26) 森田一喜朗・ほか：西日泌尿，**35**：553, 1973.
- 27) 松浦謙一・ほか：日泌尿会誌，**64**：422, 1973 (学会報告).
- 28) 宮川征男・ほか：日泌尿会誌，**64**：417, 1973 (学会報告).
- 29) 本村勝昭・ほか：日泌尿会誌，**65**：535, 1974 (学会報告).
- 30) Maldonado, J. E. et al.: Amer. J. Med., **37**: 499, 1964.
- 31) McAlhany, J. C. et al.: Amer. J. Surg., **122**: 117, 1971.
- 32) O'Brien III, D. P. et al.: Surg. Gynec. Obst., **139**: 739, 1974.
- 33) Thomason, WM. B. et al.: J. Urol., **108**: 526, 1972.
- 34) Boijesen, E. et al.: Acta Radiologica, **57**: 433, 1961.
- 35) Cosgrove, M. D. et al.: J. Urol., **110**: 632, 1973.

(1975年10月8日受付)