

分節性動脈中膜融解が疑われた腎仮性動脈瘤破裂の1例

水谷 晃輔¹, 菊地 美奈¹, 近藤 浩史²守山 洋司¹, 土屋 朋大¹, 仲野 正博¹江原 英俊¹, 出口 隆¹, 篠田 育男³¹岐阜大学医学部泌尿器科, ²岐阜大学医学部放射線科, ³東海中央病院泌尿器科A RUPTURED PSEUDOANEURYSM OF THE RENAL ARTERY
ASSOCIATED WITH SEGMENTAL ARTERIAL MEDIOLYSISKosuke MIZUTANI¹, Mina KIKUCHI¹, Hiroshi KONDO²,
Yoji MORIYAMA¹, Tomohiro TSUCHIYA¹, Masahiro NAKANO¹,
Hidetoshi EHARA¹, Takashi DEGUCHI¹ and Ikuo SHINODA³¹The Department of Urology, Gifu University Graduate School of Medicine²The Department of Radiology, Gifu University Graduate School of Medicine³The Department of Urology, Tokai Central Hospital

We present a 71-year-old woman with spontaneous perinephric hematoma due to a rupture of pseudoaneurysm of the right renal artery on the fourth day after radical cystectomy and bilateral ureterocutaneostomy for bladder cancer. This patient received steroid therapy for chronic rheumatoid arthritis for several years. The digital subtraction angiography of the right renal artery showed two pseudoaneurysms in the anterior inferior segmental branch and the posterior inferior segmental branch. Transarterial coil embolization of the right renal artery proximally and distally to the two aneurysms was performed without complications. Moreover, the additional angiography showed typical string-of-beads appearance and small aneurysms in abdominal visceral arteries, suggesting segmental arterial mediolysis (SAM) as a possible etiology. Differential diagnoses of SAM are discussed.

(Hinyokika Kiyo 54 : 489-491, 2008)

Key words : Segmental arterial mediolysis, Renal artery pseudoaneurysm, Perinephric hematoma

緒 言

腎の仮性動脈瘤は腎部分切除術, 腎外傷, 腎生検術, 経皮的腎瘻造設術などに合併する比較的稀な疾患である。一方, 分節性動脈中膜融解 segmental arterial mediolysis (SAM) は1976年 Slavin らにより提唱された非動脈硬化性, 非血管炎性の変性疾患である¹⁾。主として腹部内臓動脈(筋性動脈)の中膜が分節性に融解して, 進行例では動脈瘤(解離性または仮性)を形成し破裂するという特徴を持つ。今回われわれは膀胱癌に対して根治的膀胱摘除術および一側尿管皮膚瘻造設術後4日目に, 右腎周囲血腫で発症した腎仮性動脈瘤を経験した。本例はTAEで治癒したが, その際に他の腹部内臓動脈にも連珠サイン string of beads sign と動脈瘤を認め, その原因としてSAMが疑われたので報告する。

症 例

患者: 71歳, 女性

主訴: 無症候性肉眼的血尿

既往歴: 甲状腺機能亢進症, 慢性関節リウマチ(ス

テロイド投与中)

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2007年6月頃に無症候性肉眼的血尿が出現し, 前医受診。多発性膀胱癌の術前診断にて同年7月に経尿道的膀胱腫瘍切除術を受け, 病理検査で筋層浸潤を疑われて当科に紹介となった。体重減少・発熱はなく, CRPは0.27 mg/dlと軽度の上昇を認めたが, リウマチによるものと判断した。当科の術前評価では, 腫瘍が膀胱内に残存し, 筋層浸潤を否定できないこと, ステロイド内服中でありBCG膀胱腔内注入療法は禁忌であることから, 患者家族の同意の上, 同年10月に膀胱摘除術を選択, および一側尿管皮膚瘻造設術を施行した。摘出標本の病理診断は尿路上皮癌, G2 > G3, pT1N0M0, u-rt0, ur0, ew0, ly0, v0であった。術中出血量は700 mlで, 自己血1,160 mlを輸血した。術後経過は良好であったが, 術後第4病日に全身倦怠感と右側腹部痛を訴え, 第5病日に実施した腹部単純CTで右腎周囲血腫を認めた。血液検査では貧血の進行を認めた(Hb 11.3 g/dl から 7.3 g/dl)が, 全身状態は安定していた。第7病日に実施したダイナミックCTでは右腎周囲血腫には変化を認めな

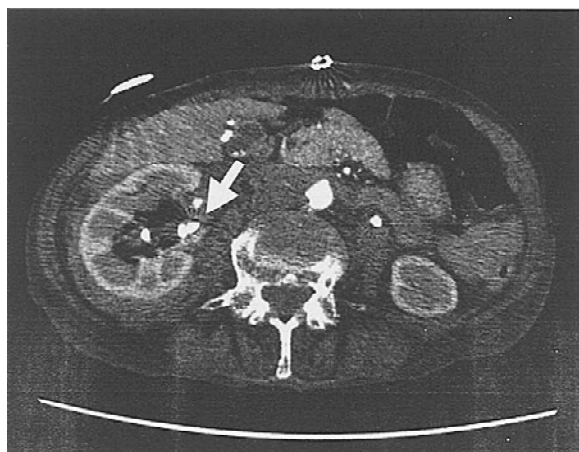


Fig. 1. Computed tomography shows right perinephric hematoma and pseudoaneurysm of right renal artery (arrow).

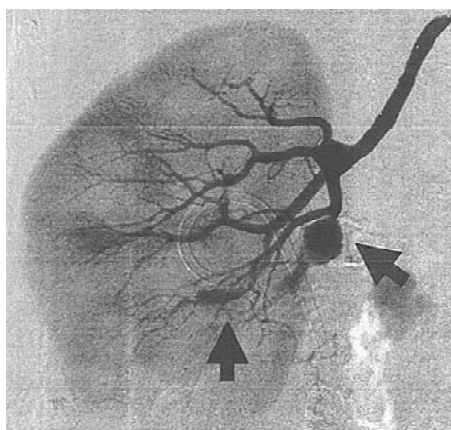


Fig. 2. Digital subtraction angiography (DSA) image of right renal artery shows two pseudoaneurysms of the anterior inferior segmental branch and the posterior inferior segmental branch (arrows).

かったが、右腎門部の2カ所に仮性動脈瘤の存在が疑われた (Fig. 1)。第11病日に右腎動脈の3D-CT血管造影を実施したところ、右腎周囲血腫は縮小していたが、右腎仮性動脈瘤の1つが増大していて再破裂の危険性があり、TAEを行った。TAEは翌日に実施した (Fig. 2)。増大傾向のある右腎前下降枝の仮性動脈瘤はマイクロコイル14個とデタッチャブルコイル2個、変化のない右腎後下降枝はマイクロコイル4個とデタッチャブルコイル2個で塞栓した。明らかな誘因のない多発仮性動脈瘤であったため、SAMの可能性を考慮して腹部動脈の血管造影を追加した。その結果、左腎動脈腹側下極枝、左胃動脈、短胃動脈、右胃大網動脈および空腸の辺縁動脈に連珠サインと動脈瘤が認められた (Fig. 3)。これらの動脈瘤は主要臓器の栄養血管であり、予防的な塞栓によって臓器障害が危惧されたため、無治療経過観察とした。

その後の経過は順調で、術後第23病日に退院した。退院後に実施した頭部MRI・MRAでは脳の主要血

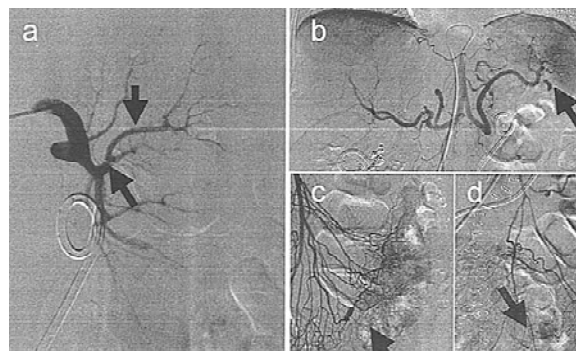


Fig. 3. DSA image of abdominal visceral arteries shows typical string-of-beads appearance and small aneurysms of left renal artery (a), celiac trunk (b), gastropiploic artery (c) and superior mesenteric artery (d) (arrows).

管には動脈瘤は認めなかった。本例は組織検査が未実施であるが、臨床経過ならびに腹部内臓動脈に多発する連珠サインと動脈瘤を認めたことから、SAMと臨床診断し、外来での経過観察を実施している。

考 察

非外傷性腎周囲血腫は稀な疾患であるが、その原因としては、腎癌・腎血管筋脂肪腫の破裂、結節性多発動脈炎 polyarteritis nodosa (PN) などの血管炎症候群に関連した動脈瘤破裂、腎嚢胞の破裂、抗凝固・抗血小板療法の関与などが報告されている²⁾。破裂した腎動脈瘤としては血管炎に合併した腎動脈瘤以外には、患側腎に対する外科的処置後に発症した仮性動脈瘤が多く、線維筋性形成異常 fibromuscular dysplasia (FMD) に関連した腎動脈瘤も報告されている³⁾。SAMによる腎動脈瘤が原因の腎周囲血腫の報告はきわめて稀で、本邦では確実例が1例のみ報告されている⁴⁾。

SAMの臨床診断は、連珠サインと呼ばれる微細動脈瘤、これを伴った解離性動脈瘤や仮性動脈瘤が血管造影で特徴的所見とされるが⁵⁾、確定診断には動脈病変部の組織学検査が不可欠である。それは動脈壁中膜平滑筋細胞の空胞変性から始まり、やがて弾性板が断裂し、動脈壁内の出血や外膜周囲のフィブリン沈着などが生じる。さらに進行すると動脈壁は部分断裂し、仮性動脈瘤や解離性動脈瘤の形成から破裂・出血に至る。しかし、内弾性線維は残存し、外膜周囲の炎症は最小限に留まる⁶⁾。なお現在までSAMを合併しやすい基礎疾患の報告はない。

本例は組織学的検査を行っていないため、類似疾患との鑑別が問題となる。SAMの鑑別疾患としては、FMDが重要である。SAMの治療した病変は組織学的にFMDとの鑑別が困難である。SAMはFMDの前駆病変との仮説があるが、稲田らはSAMの初期急

性病変が破裂を免れて修復過程に移行したときに、一部が FMD に類似した組織像を呈するものと推測している⁶⁾。FMD は比較的若年者に多く、血管造影では数珠状の動脈狭窄を呈し、解離や瘤破裂は稀である⁷⁾。術前に 3D-CT などの血管の画像検査を実施していないが、本例では両腎動脈に血管病変が存在したにも関わらず高血圧を認めず、FMD の可能性は低いと考える。

腎周囲血腫の報告が散見される PN も、鑑別疾患としては重要である⁸⁾。PN の血管造影では腹部大動脈分枝（特に腎内小動脈）に多発小動脈瘤と狭窄・閉塞を認める⁹⁾。PN の診断基準（厚生省特定疾患難治性血管炎分科会、2006年修正）において、本例では主要症状10番目の多発関節痛を認めるのみである。この症状もステロイド治療中の慢性関節リウマチが原因で、PN によるものではない。本例では破裂動脈瘤の組織検査が未実施であるが、臨床ならびに画像所見から SAM が強く疑われた。

約30%の SAM の症例で複数の動脈領域に多発性に動脈瘤を認める⁶⁾。このことから原因不明の腎仮性動脈瘤を認めた場合には SAM も念頭におき、腹部内臓動脈を広範囲に検索する必要がある。SAM の予後については不明な点が多いが、多発動脈瘤を認める例でも、中央値3年の観察期間で、自然治癒や変化なしなどが報告されている⁵⁾。また中膜融解部が肉芽組織で置換し修復・治癒する場合が報告されている⁶⁾。一方、臨床的には動脈瘤が広汎に存在する場合は、破裂前の治療は実際上困難である。本例では破裂動脈瘤およびその近傍の腎動脈瘤は塞栓し、他の動脈瘤に対しては経過観察を選択したが、今後は注意深い経過観察と緊急時の適切な対応を要するものと思われた。

結 語

臨床的に SAM と診断した右腎周囲血腫の1例を報告した。本疾患の泌尿器科領域での報告は稀であり、

その概念と鑑別疾患について考察した。

文 献

- 1) Slavin RE and Gonzalez-Vitale JC: Segmental mediolytic arteritis: a clinical pathologic study. *Lab Invest* **35**: 23-29, 1976
- 2) Zhang JQ, Fielding JR and Zou KH: Etiology of spontaneous perirenal hemorrhage: a meta-analysis. *J Urol* **167**: 1593-1596, 2002
- 3) 西川信之, 大西裕之, 河瀬紀夫, ほか: 妊娠に合併した腎動脈瘤破裂の1例. *泌尿紀要* **49**: 103-106, 2003
- 4) 柴田昌幸, 上坂貴洋, 木下英幸, ほか: 大量の腎出血を初発症状とした分節性動脈中膜融解 segmental arterial mediolysis の1例. *診断病理* **24**: 121-124, 2007
- 5) Michael M, Widmer U, Wildermuth S, et al.: Segmental arterial mediolysis: CTA findings at presentation and follow-up. *Am J Roentgenol* **187**: 1463-1469, 2006
- 6) 稲田 潔, 池田庸子, 平川栄一郎, ほか: Segmental Arterial Mediolytic (SAM)—最近の本邦報告例について—. *病理と臨* **21**: 1165-1171, 2003
- 7) Yoshioka I, Arichi N, Tokugawa S, et al.: Spontaneous rupture of common iliac artery associated with fibromuscular dysplasia presenting with colic pain suggestive of ureteral stone. *Hinyokika Kiyo* **53**: 721-724, 2007
- 8) Schouffoer AA, Siegert CE, Arend SM, et al.: Embolization of a ruptured aneurysm in classic polyarteritis nodosa presenting as perirenal hematoma. *Arch Intern Med* **158**: 1466-1468, 1998
- 9) 尾崎承一: 【内科疾患の診断基準病型分類・重症度】膠原病 結節性多発動脈炎の診断基準・重症度. *内科* **95**: 1460-1464, 2005

(Received on January 23, 2008)

(Accepted on March 2, 2008)