ステントで治療したナットクラッカー症候群の 1 例 —超音波所見を中心に—

田端 強志¹ 金 徳男¹ 粕谷 秀輔² 神谷 直人³ 寺田 一志² 東丸 貴信⁴

要 旨：症例は 26 歳，女性。前医にてナットクラッカー症候群の診断を受け，経過観察していたが，血尿，貧血症状が悪化したため当院紹介となった。超音波，CT 検査で腹部大動脈と上腸間膜動脈間の左腎静脈は狭窄し，腎門部の左腎静脈は拡張していた。腎静脈カテーテル検査では左腎静脈狭窄部前後の圧較差は 10 mmHg。左腎静脈狭窄部を 12 mm×40 mm の E-Luminex Stent 2 個にて拡張する血管内治療を施行した。治療後，血尿，貧血ともに改善し経過良好である。(J Jpn Coll Angiol 2014; 54: 73–78)

Key words: nutcracker syndrome, left renal vein, ultrasound test

はじめに

ナットクラッカー症候群(左腎静脈捕捉症候群)とは左腎静脈が上腸間膜動脈と腹部大動脈の間に挟まれることによって還流異常を起こした病態である。本症候群は重度の自覚症状がない限り経過観察されることが多いが，今回我々は血尿・貧血が進行した成人女性に対し，左腎静脈狭窄部にステント留置術を施行し，還流異常そして血尿・貧血が改善した 1 例を経験したので報告する。

症 例

症 例：26 歳，女性

主 訴：血尿，貧血

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：2010 年 8 月に血尿，貧血を伴ったナットクラッカー症候群の疑いで近医より紹介受診。膀胱鏡，左尿管鏡を施行するも腫瘍性病変認めず，その後ナットクラッカー症候群を含め経過観察となった。しかし，2011 年 5 月持続する血尿，貧血悪化のため再び受診。ナットクラッカー症候群による症状と判断し治療を検討した。左腎静脈狭窄に対するステント留置術を行う血管内治療

を計画し，入院となった。

入院時現症：身長 159 cm，体重 49 kg，BMI 19.4。腹痛や背部痛なし。

入院時血液検査：赤血球 $425 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，ヘモグロビン 9.4 g/dl，ヘマトクリット 32.2%と貧血を認めた。尿検査では潜血反応 3+。生化学検査では BUN，クレアチニン値は正常で腎機能異常は認めなかった。

超音波検査(治療前)：腹部大動脈と上腸間膜動脈間の左腎静脈は狭窄し，腎門部の左腎静脈は拡張していた。また側副路の腰静脈も認めた(Fig. 1A)。断層法で計測した左腎静脈狭窄部径(Dn)は 1.4 mm，拡張した左腎静脈腎門部径(Dd)は 8.5 mm であり，その径比 Dd/Dn は 6.1 であった(Fig. 1A)。カラードプラ法では左腎静脈狭窄部から下大静脈側にかけてモザイク血流を認め，また拡張した左腎静脈腎門部から流出する腰静脈の血流信号も認めた(Fig. 2A)。パルスドプラ法で左腎静脈狭窄部の最大血流速度(PVn)は 115 cm/s(Fig. 2B)，拡張した左腎静脈腎門部の最大血流速度(PVd)は 48 cm/s であり(Fig. 2C)，最大血流速度の比 PVn/PVd は 2.4 であった。

腹部 CT 検査(治療前)：腹部大動脈と上腸間膜動脈間の左腎静脈は狭窄しており，腎門部の左腎静脈は拡張し，側副路の腰静脈も認めた(Fig. 1B)。

血管内治療：右大腿静脈アプローチにて施行した。腎静脈カテーテル検査では左腎静脈の高度狭窄により腎静脈本幹はほとんど描出されず，腰静脈や左卵巣静脈など

¹ 東邦大学医療センター佐倉病院生理機能検査部

² 東邦大学医療センター佐倉病院放射線科

³ 東邦大学医療センター佐倉病院泌尿器科

⁴ 東邦大学医療センター佐倉病院循環器センター

第 54 回日本脈管学会総会(2013 年 10 月，東京)にて発表
doi: 10.7133/jca.13-00045

2013 年 12 月 1 日受付 2014 年 3 月 11 日受理

Figure 1 Ultrasound test and computed tomography findings in patients with nutcracker syndrome before stenting.

Both tests showed narrowed segment in left renal vein (LRV) between the aorta and the superior mesenteric artery and dilated the hilar LRV portion and lumbar vein (yellow arrow: lumbar vein).

A: Ultrasound test, B: computed tomography

Dn, diameter of the narrowed portion; Dd, diameter of the distended portion; Ao, abdominal aorta; SMA, superior mesenteric artery

Figure 2 Duplex ultrasound test of the patient before stenting.

A: Color Doppler showed mosaic pattern in the narrowed aortomesenteric portion and dilated lumbar vein (white arrow: mosaic flow pattern, yellow arrow: lumbar vein).

B: The peak velocity was 115 cm/s in the narrowed aortomesenteric portion.

C: The peak velocity was 48 cm/s in the distended portion.

PVn, peak velocity in the narrowed portion; PVd, peak velocity in the distended portion

著明に発達した側副路を認めた(**Fig. 3A**)。左腎静脈狭窄部前後の圧較差は 10 mmHg であった。治療前の超音波と CT から左腎静脈腎門部の拡張した径は 10 mm 程度であり、当初は 12 mm×40 mm の自己拡張型ステント(E-Luminexx Stent)を 1 個使用する計画であった。しかし、左腎静脈前後方向の屈曲・蛇行が強く、ステント両端を正確に合わせることが困難となったため、同ステン

ト 2 個を一部重ねて長い範囲で留置した。留置後、圧較差と側副路は消失し、下大静脈への良好な流入を確認し合併症なく終了した(**Fig. 3B**)。

超音波検査(2 カ月後)：左腎静脈狭窄部に留置されたステントが明瞭に描出された(**Fig. 4**)。治療前に認めた左腎静脈の狭窄はステントにより解除され、拡張していた側副路の腰静脈は消退した(**Fig. 4A**)。治療後、断層法で

Figure 3 Selective left renal phlebography findings in patient with nutcracker syndrome before and after stenting.

A: Selective left renal phlebography showed well developed collateral vein before stenting (yellow arrow: lumbar vein, white arrow: left ovarian vein, black arrow: hemiazygos vein).

B: Selective left renal phlebography showed good reflex to the inferior vena cava and the lumbar vein were disappeared after stenting.

Figure 4 Ultrasound test showed the stent was placed into left renal vein in the narrowed aortomesenteric portion (yellow arrow: stent).

Dn, diameter of the narrowed portion; Dd, diameter of the distended portion; Ao, abdominal aorta; SMA, superior mesenteric artery; IVC, inferior vena cava

計測した旧狭窄部の左腎静脈径(Dn)は9.7 mm, 腎門部の左腎静脈径(Dd)は10.2 mmであり, 径比 Dd/Dn は1.1 と治療前より低値を示した(**Fig. 3A**)。カラードプラ法では治療前に認められた左腎静脈狭窄部から下大静脈側にかけてのモザイク血流は消失し, 腰静脈の血流信号も消失した(**Fig. 5A**)。パルスドプラ法では左腎静脈旧狭窄部の最大血流速度(PVn)は30 cm/s(**Fig. 5B**), 左腎静脈腎門部の最大血流速度(PVd)は29 cm/sであり(**Fig. 5C**), 最大血流速度の比 PVn/PVd は1.0 と治療前と比較して低値を示した。

治療経過: 治療後, ヘモグロビン値は上昇し, 2カ月後, 正常域に戻った。尿潜血は2カ月後まで3+であったが, 9カ月後に陰性化した(**Table 1**)。治療後, 3カ月間バイアスピリンの内服を行った。術後2年経過するがステント内血栓症などの合併症は認めていない。

考 察

ナットクラッカー症候群(左腎静脈捕捉症候群)とは上腸間膜動脈と腹部大動脈の間隔が狭小化し左腎静脈が圧迫されて静脈圧が亢進し, 腎性血尿や側腹部痛をきたす

Figure 5 Duplex ultrasound test of the patient after stenting.

A: Color Doppler showed mosaic pattern and lumbar vein had disappeared after stenting (yellow arrow: no mosaic flow pattern).

B: The peak velocity was 30 cm/s in the narrowed aortomesenteric portion.

C: The peak velocity was 29 cm/s in the distended portion.

SMA, superior mesenteric artery; PVn, peak velocity in the narrowed portion; PVd, peak velocity in the distended portion

Table 1 Duplex ultrasound and symptoms findings in patient with nutcracker syndrome before and after stenting

	Pre-op	Post-op		
		2 weeks	2 months	9 months
LRV diameter (mm)				
Narrowed aortomesenteric portion (Dn)	1.4	9.5	9.7	9.6
Distended portion (Dd)	8.5	9.2	10.7	10.3
Dd/Dn ratio	6.1	1.0	1.1	1.1
Peak velocity (cm/s)				
Narrowed aortomesenteric portion (PVn)	115	96	30	35
Distended portion (PVd)	48	30	29	37
PVn/PVd ratio	2.4	3.2	1.0	0.9
Anemia (hemoglobin: g/dl)	9.7	11.4	13.2	12.5
Hematuria (urine occult blood reaction)	3+	3+	3+	(-)

症候群である^{1, 2)}。本症候群の正確な診断には左腎静脈造影および引き抜き圧較差の証明(正常値 0~4 mmHg)が必要とされてきたが^{2, 3)}、簡便で非侵襲性の超音波検査の有用性が報告されている⁴⁾。その評価法には超音波断層法で左腎静脈狭窄部径(Dn)と拡張した腎門部径(Dd)の計測から求めた径比(Dd/Dn)やパルスドプラ法を用いて狭窄部の最高血流速度(PVn)と腎門部の最高血流速度(PVd)の計測から求めた流速比(PVn/PVd)などがある。これらの径比や流速比の cut off 値は小児、成人ともに 4.0~5.0

と報告されており⁵⁻⁸⁾、成人のナットクラッカー症候群におけるパルスドプラ法を用いた流速比は断層法による径比より感度、特異度ともに高いことが報告されている(感度 80% vs 69%, 特異度 94% vs 89%)⁶⁾。しかし、パルスドプラ法で計測した流速値は側副路形成の程度によって変化し、側副路が発達すると左腎静脈狭窄部の流速値は減少することがあるので評価には注意が必要である^{8, 9)}。本症例でも著明な側副路形成により狭窄部の流速値が上昇せず、感度・特異度ともに高い流速比が径比よりも低

値を示したと思われる。

ナットクラッカー症候群に対する腎静脈ステント留置術は1996年Nesteらによって初めて報告され¹⁰⁾、外科的治療よりも侵襲が少ない方法として注目されており、2000年以降症例報告が少しずつ増えてきている¹¹⁻¹⁵⁾。本症候群は低体重BMI(body mass index)<18.5のやせ形な女性に多いといわれており⁸⁾、内臓脂肪と大動脈-上腸管膜動脈角度との有意な正の相関関係が報告され^{16, 17)}、体重増加により症状が改善されることから^{8, 16)}、無処置で経過観察されることが多い。手術適応となるのは高度の血尿や強い左側腹部痛の持続する症例に限られる⁹⁾。本症例はBMI 19.4と正常下限の少しやせ形な若年女性であり、まずは体重増加を勧め、経過観察していた。しかし、高度の血尿で貧血のコントロールが困難、日常生活も不自由となったため外科的治療および血管内治療それぞれの長所や短所を説明したうえで左腎静脈狭窄に対してステント留置術を行う血管内治療を施行した。

超音波検査はナットクラッカー症候群の治療前後における経過観察に有用であった(Table 1)。治療前の左腎静脈径は腹部大動脈と上腸間膜動脈による狭窄と腎門部の拡張のためDd/Dnは6.1と高値を示していたが、治療後は1.0と治療前より低値を示した。また、狭窄部の血流速は治療前115 cm/s、2週間後96 cm/sであり、流速比は2.4、3.2と高値であったが、2カ月後には30 cm/sと著明に減少し、流速比も1.0と低値を示した。左腎静脈狭窄部の血流速は狭窄を解除することで治療前より治療後のほうが血流速度は減少するが、治療直後から減少する症例と数カ月かけてゆるやかに減少する症例があることが報告されている¹⁵⁾。この原因は明らかでないが本症例は後者と思われる。超音波所見とヘモグロビン値や血尿との関係は、治療後、腎臓へのうっ血解除によりヘモグロビン値は上昇したが、2週間後の流速比は3.2と高値のままで、尿潜血3+、ヘモグロビン11.4 g/dlと低値であった。2カ月後に旧狭窄部の血流速は著明に減少し、流速比も1.0となり、尿潜血は3+であったが、ヘモグロビン値は正常域に戻り、9カ月後に尿潜血は陰性化した。しかし、ステント留置し腎静脈の圧迫を解除しても血尿が持続する報告もあり、その原因として特発性腎出血や腎炎など他疾患の存在の可能性を示唆していた¹⁵⁾。

左腎静脈ステント留置後の抗血小板療法・抗凝固療法は十分な症例の蓄積がないため決まった治療法はない。また、静脈ステント血栓閉塞の発生自体少ない¹⁵⁾。過去の症例報告をみてもアスピリン、クロピドグレル、ワーファリンとまちまちで内服期間についても1~6カ月間と

さまざまである¹³⁻¹⁵⁾。本症例は最も報告数の多いバイアスピリン内服による抗血小板療法を選択した。本症例は治療して2年経過するが現在まで術後の合併症はない。しかし、右心房内へのステント離脱や下大静脈へのステント逸脱、左腎門部へのステント移動が報告されており¹⁸⁻²¹⁾、今後も超音波による経過観察は必要と思われる。

結 語

左腎静脈狭窄部にステント留置治療したナットクラッカー症候群の1例を経験した。超音波検査はナットクラッカー症候群の診断・治療適応診断の一助となり、ステント留置後の経過観察に有用と思われる。

利益相反

著者全員が利益相反はありません。

文 献

- 1) Scultetus AH, Villavicencio JL, Gillespie DL: The nutcracker syndrome: its role in the pelvic venous disorders. *J Vasc Surg* 2001; **34**: 812-819
- 2) Shaper KR, Jackson JE, Williams G: The nutcracker syndrome: an uncommon cause of haematuria. *Br J Urol* 1994; **74**: 144-146
- 3) Dever DP, Ginsburg ME, Millet DJ, et al: Nutcracker phenomenon. *Urology* 1986; **27**: 540-542
- 4) Takebayashi S, Ueki T, Ikeda N, et al: Diagnosis of the nutcracker syndrome with color Doppler sonography: correlation with flow patterns on retrograde left renal venography. *AJR Am J Roentgenol* 1999; **172**: 39-43
- 5) Park SJ, Lim JW, Cho BS, et al: Nutcracker syndrome in children with orthostatic proteinuria: diagnosis on the basis of Doppler sonography. *J Ultrasound Med* 2002; **21**: 39-45; quiz 46
- 6) Kim SH, Cho SW, Kim HD, et al: Nutcracker syndrome: diagnosis with Doppler US. *Radiology* 1996; **198**: 93-97
- 7) Fitoz S, Ekim M, Ozcakar ZB, et al: Nutcracker syndrome in children: the role of upright position examination and superior mesenteric artery angle measurement in the diagnosis. *J Ultrasound Med* 2007; **26**: 573-580
- 8) Shin JI, Park JM, Lee JS, et al: Effect of renal Doppler ultrasound on the detection of nutcracker syndrome in children with hematuria. *Eur J Pediatr* 2007; **166**: 399-404
- 9) Takahashi Y, Sano A, Matsuo M: An ultrasonographic classification for diverse clinical symptoms of pediatric nutcracker phenomenon. *Clin Nephrol* 2005; **64**: 47-54
- 10) Neste MG, Narasimham DL, Belcher KK: Endovascular stent placement as a treatment for renal venous hypertension. *J*

- Vasc Interv Radiol 1996; **7**: 859–861
- 11) Park YB, Lim SH, Ahn JH, et al: Nutcracker syndrome: intra-vascular stenting approach. Nephrol Dial Transplant 2000; **15**: 99–101
 - 12) Chiesa R, Anzuini A, Marone EM, et al: Endovascular stenting for the nutcracker phenomenon. J Endovasc Ther 2001; **8**: 652–655
 - 13) Chen W, Chu J, Yang JY, et al: Endovascular stent placement for the treatment of nutcracker phenomenon in three pediatric patients. J Vasc Interv Radiol 2005; **16**: 1529–1533
 - 14) Basile A, Tsetis D, Calcara G, et al: Percutaneous nitinol stent implantation in the treatment of nutcracker syndrome in young adults. J Vasc Interv Radiol 2007; **18**: 1042–1046
 - 15) Chen S, Zhang H, Shi H, et al: Endovascular stenting for treatment of Nutcracker syndrome: report of 61 cases with long-term followup. J Urol 2011; **186**: 570–575
 - 16) Park SJ, Shin JI: Low body mass index in nutcracker phenomenon: an underrecognized condition. Kidney Int 2013; **84**: 1287
 - 17) Arthurs OJ, Mehta U, Set PA: Nutcracker and SMA syndromes: What is the normal SMA angle in children? Eur J Radiol 2012; **81**: e854–861
 - 18) Kim SJ, Kim CW, Kim S, et al: Long-term follow-up after endovascular stent placement for treatment of nutcracker syndrome. J Vasc Interv Radiol 2005; **16**: 428–431
 - 19) Hartung O, Grisoli D, Boufi M, et al: Endovascular stenting in the treatment of pelvic vein congestion caused by nutcracker syndrome: lessons learned from the first five cases. J Vasc Surg 2005; **42**: 275–280
 - 20) Chen S, Zhang H, Tian L, et al: A stranger in the heart: LRV stent migration. Int Urol Nephrol 2009; **41**: 427–430
 - 21) Wang X, Zhang Y, Li C, et al: Results of endovascular treatment for patients with nutcracker syndrome. J Vasc Surg 2012; **56**: 142–148

A Case of Nutcracker Syndrome in an Adult Treated by Stenting: Ultrasonography Findings

Tsuyoshi Tabata,¹ Tokuo Kon,¹ Shusuke Kasuya,² Naoto Kamiya,³ Hitoshi Terada,² and Takanobu Tomaru⁴

¹ Department of Clinical Physiology, Toho University Medical Center Sakura Hospital, Chiba, Japan

² Department of Radiology, Toho University Medical Center Sakura Hospital, Chiba, Japan

³ Department of Urology, Toho University Medical Center Sakura Hospital, Chiba, Japan

⁴ Department of Cardiovascular Center, Toho University Medical Center Sakura Hospital, Chiba, Japan

Key words: nutcracker syndrome, left renal vein, ultrasound test

A 26 year-old female diagnosed with nutcracker syndrome was referred to our hospital to undergo stent placement to left renal vein due to progressive anemia and macroscopic hematuria. Ultrasound test and computed tomography before stent placement showed narrowed segment in left renal vein (LRV) between the aorta and the superior mesenteric artery and dilated the hilar LRV portion. Venous pressure gradient in the stenosis LRV was 10 mmHg. Two E-Luminexx stents (12 mm×40 mm) were placed at the stenotic site of the LRV. Patient's symptom has improved and no postoperative complication has occurred to present.

(J Jpn Coll Angiol 2014; **54**: 73–78)