左腎静脈内ステント留置術が奏功したナットクラッカー症候群の1例

¹⁾ 東邦大学医療センター佐倉病院泌尿器科, ²⁾ 東海大学医学部附属病院八王子病院放射線科

岡 了¹⁾ 神谷 直人¹⁾ 杉浦 恵子¹⁾ 遠藤 匠¹⁾
矢野 仁¹⁾ 直井 牧人¹⁾ 西見 大輔¹⁾ 高波眞佐治¹⁾
長谷部光泉²⁾ 鈴木 啓悦¹⁾

要旨:

強い血尿を伴うナットクラッカー症候群に対して、左腎静脈ステント留置術を行い、良好な結果を得た症例を報告する。症例は26歳女性。2009年1月から肉眼的血尿および左背部痛を認め、近医受診。ナットクラッカー症候群の診断の下、経過観察されていた。その後も高度な血尿が持続し、精査加療目的にて2010年8月当科紹介受診。CTにて上腸間膜動脈と大動脈間の左腎静脈狭窄所見を認めた。膀胱鏡検査では左尿管口からの出血、尿管鏡検査では左腎盂粘膜からのびまん性出血が確認された。尿細胞診はClass IIであった。その後も経過観察されていたが、高度な肉眼的血尿と左側腹部痛の改善を認めなかったため、当院倫理委員会の承認および本人の同意を得て、2011年7月左腎静脈内ステント留置術目的で入院となった。

術中所見では、左腎静脈から下大静脈への返血の遅れと拡張した多数の側副血行路を認めた。ステント留置術は、Bard社製自己拡張型(径12×40mm)血管ステントを左腎静脈内に2本留置することで、狭窄は改善し、側副血行路も消失した。

術後の有意な有害事象は認めず、術後第4病日にて退院。術後3カ月のCTでは、左腎静脈の再狭窄を認めず、術後6カ月で血尿および腰背部痛は消失した。

(日泌尿会誌 104(6):716~719, 2013)

キーワード: ナットクラッカー症候群, 左腎静脈, 血管内ステント留置

緒言

ナットクラッカー症候群に対する治療は、多くの場合、保存的治療が選択されるが、高度な血尿や疼痛持続例では外科的治療も考慮される。今回我々は、高度な血尿を伴うナットクラッカー症候群に対して、左腎静脈内にステント留置を行い、良好な結果を得た症例を経験したので報告する。

症例

患者: 26歳 女性。

主訴: 肉眼的血尿。

既往歴、家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 2009年1月に持続的な肉眼的血尿および蛋白尿の精査目的にて近医腎臓内科受診。内科的疾患は否定され、同院の泌尿器科受診し、ナットクラッカー症候群の診断。外来にて経過観察していたが、高度な血尿が持続したため、精査加療目的で2010年5月当院を紹介受診した。

受診時現症: 身長159cm 体重40kg BMI 15.8kg/m² 左腰背部痛を認めた。

入院時検査: RBC 4.65×10⁶/mm³, Hb 13.4g/dl, その他、血液生化学所見に異常を認めなかった。尿検査では尿蛋白(2+), 尿中RBC 100個>1視野と蛋白尿、血尿を認めた。膀胱鏡検査では左尿管口からの出血、尿管鏡検査では左腎盂粘膜からのびまん性出血を認めた。尿細胞診はClass IIであった。

画像検査: 造影CTでは腹部大動脈と上腸間膜動脈に挟まれた部位での左腎静脈狭窄像と狭窄部前後での拡張像を認めた(Fig. 1)。また、超音波ドップラー検査で狭窄部の血流速度が吸気時に115.0cm/sec、呼気時で67.0cm/secと加速血流を認めた。

受診後経過: その後も高度な肉眼的血尿と疼痛が持続した。根治的治療として腎静脈転位術・自家腎移植術等の外科的治療および左腎静脈内ステント留置術について詳細に説明した所、左腎静脈内ステント留置術を希望された。左腎静脈内ステント留置術目的にて2011年7月当科入院となった。尚、本術式施行にあたり当院倫理委員

受付日: 2013年3月12日, 受理日: 2013年4月16日

岡 了: 東邦大学医療センター佐倉病院泌尿器科 [〒285-8741 千葉県佐倉市下志津 564-1]

E-mail: ryou.oka@med.toho-u.ac.jp

© 2013 The Japanese Urological Association

会での承認を得た。

血管内治療：当院放射線科医により，局所麻酔下に右大腿静脈から7Fr ガイディングシースを留置．選択的左腎静脈造影にて左腎静脈本幹が殆ど描出されないほどの高度な狭窄を認めた．また，卵巣静脈・腰静脈・半奇静脈等を経由する collateral が著明に発達し，非常に緩徐な流速で下大静脈が描出された (Fig. 2a)．また，狭窄部前後の圧較差は10mmHg と有意であった．事前に施行したCT およびエコーで左腎静脈最大径は12mm 程度であったため，径12mm×40mm のBard 社製自己拡張型ステントを使用した．ステントの脱落を防ぐため，左腎静脈末梢側に1本目のステントを留置後，バルーンにて圧着．その後，2本目のステントを1本目と一部重なる形で留置し，圧着した．ステント留置後の造影では，左腎静脈の狭窄や collateral は描出されず，正常な下大静脈への返血が認められた (Fig. 2b)．また，圧較差は0 mmHg となっていた．

Fig. 1 術前 CT. 左腎静脈が大動脈と上腸間膜動脈により挟まれ細くなり，狭窄部の抹消側や中枢側では左腎静脈の拡張を認める．

Fig. 2a 卵巣静脈・腰静脈・半奇静脈などを経由する様々な collateral が著明に発達している．

Fig. 2b 2本目のステント留置後の造影所見．collateral は消失し，正常な下大静脈への返血が認められる．

Fig. 3 術後3カ月 CT 所見．血栓形成やステント閉塞を認めず．

治療経過：ステント留置後、第4病日に退院。術後の疼痛は一過性且つ、自制内であった。術後3カ月のCTでは、ステントの脱落や閉塞を認めなかった(Fig. 3)。術後、抗血小板療法(バイアスピリン®100mg/day)を施行していたが、術後6カ月で中止。現在(術後19カ月)、左腎静脈内血栓形成や再狭窄は認められない。また、血尿・蛋白尿・疼痛などの自覚症状は術後6カ月で全て消失した。

考 察

ナットクラッカー症候群は、Left renal vein entrapment syndromeとも言われ、左腎静脈が腹部大動脈と上腸間膜動脈の間で過剰に圧排され、静脈内圧が上昇。その結果、左腎の毛細血管が破綻し、血尿を生じる現象である。凝血塊により水腎を来とし、疼痛が生じる場合もある。内臓脂肪の少ない、痩せ形の男児に多く、思春期以降は側副血行路の発達により、発症率は減少するとされている。症状として無症候性の間欠的血尿が多く、精索静脈瘤や起立性蛋白尿の原因となることもある¹⁾²⁾。確立された診断基準は認められず、Ishidoyaら³⁾は、①血尿と腰背部痛の原因となる泌尿器科的疾患がない②上腸管脈動脈—大動脈間距離が5mm未満③左腎静脈の最高血流速度が15ml/sec未満④左腎静脈—下大静脈の圧格差は仰臥位で4cmH₂O以上(約2.94mmHg以上)であることを提唱しており、本症例では全てを満たしていた。

ナットクラッカー症候群に対する治療として、多くの場合、保存的治療が選択されることが多い。しかしながら、本症例のように高度な血尿や疼痛が持続する症例では外科的治療も選択される。外科的治療として、①経尿道的手術②腎摘出術③自家腎移植④腎静脈転位術⑤血管内ステント留置術などが行われている^{4)~7)}。本症例では若い女性であるため、より低侵襲な血管内ステント留置術を選択した。Chenら⁸⁾によれば、ナットクラッカー症候群61例に対してステント留置術を施行し、6カ月以内に肉眼的血尿・疼痛などの症状が改善したものは59例、奏効率は96.7%であった。但し、24カ月以内の重篤な有害事象を3例に認め、内訳は右心房内へのステント迷入、下大静脈へのステント突出、左腎静脈へのステント脱落であった。本症例ではこのような重篤な有害事象を起こさないために、綿密な静脈径の測定やステントを2重に留置する事で脱落の予防策を講じた。結果として、術後19カ月経った現在でもステントの閉塞や脱落は認めていない。我が国におけるナットクラッカー症候群に対する血管内ステント留置術は、1998年に瀬川ら⁹⁾によって初めて報告されて以来、調べうる限り本例が8例目であった。詳細な治療経過の記述を認めなかったが、24

カ月以内の再発や合併症の報告は認めなかった。

但し、本術式に対する問題点として①長期成績が不明であること、②抗凝固薬の使用期間や使用薬剤の選択(他の報告では術後3カ月程度の抗凝固療法を行っているとの報告も散見されるが、統一した見解はない。本症例では、エコーによる血管内皮の造成がないことを確認した上で中止とした。)、③熟達した手技が必要とされること、④保険適応外の治療であることなどが挙げられる。しかしながら、本術式は極めて低侵襲かつ有効な治療法であるため、今後我が国における更なるデータの蓄積が必要と考えられた。

文 献

- 1) Scultetus AH, Villavicencio JL and Gillespie DL: The nutcracker syndrome: Its role in the pelvic venous disorders. *J Vasc Surg*, **34**, 812—819, 2001.
- 2) Shaper KR, Jackson JE and Williams G: The nutcracker syndrome: an uncommon cause of haematuria. *Br J Urol*, **74**, 144—146, 1994.
- 3) Ishidoya S, Chiba Y, Sakai K and Orikasa S: Nutcracker phenomenon: a case with surgical treatment and its diagnostic criteria. *Hinyokika Kiyo*, **40**, 135—138, 1994.
- 4) Hohenfellner M, Steinbach F, Schultz-Lampel D, Schantzen W, Walter K, Cramer BM, Thüroff JW and Hohenfellner R: The nutcracker syndrome: new aspects of pathophysiology, diagnosis and treatment. *J Urol*, **146**, 685—688, 1991.
- 5) Chuang CK, Chu SH and Lai PC: The nutcracker syndrome managed by autotransplantation. *J Urol*, **157**, 1833—1834, 1997.
- 6) Neste MG, Narasimham DL and Belcher KK: Endovascular stent placement for as a treatment for renal venous hypertension. *J Vasc Interv Radiol*, **7**, 859—861, 1996.
- 7) 熱田義顕, 森本典雄, 笹島唯博: ナットクラッカー症候群に対する左腎静脈ステント留置治療例. *日血外誌*, **12**, 35—38, 2003.
- 8) Chen S, Zhang H, Shi H, Tian L, Jin W and Li M: Endovascular stenting for treatment of Nutcracker syndrome: report of 61 cases with long-term follow up. *J Urol*, **186**, 570—575, 2011.
- 9) 瀬川直樹: Expandable metallic stent が有用であった Nutcracker 現象による腎出血の1例. *泌尿器科紀要*, **44**, 454, 1998.

NUTCRACKER SYNDROME TREATED BY ENDOVASCULAR STENTING OF THE LEFT RENAL VEIN

Ryo Oka¹⁾, Naoto Kamiya¹⁾, Keiko Sugiura¹⁾, Takumi Endo¹⁾, Masashi Yano¹⁾, Makito Naoi¹⁾,
Daisuke Nishimi¹⁾, Masaharu Takanami¹⁾, Terumitsu Hasebe²⁾ and Hiroyoshi Suzuki¹⁾

¹⁾*Department of Urology, Toho University Sakura Medical Center, Chiba, Japan*

²⁾*Department of Radiology, Tokai University Hachioji Hospital, Tokyo, Japan*

Abstract:

We describe endovascular stenting of the left renal vein to treat Nutcracker syndrome accompanied by gross hematuria. A 26-year-old woman with a history of hematuria and left flank pain was admitted to another hospital in January 2009. She was referred to our hospital in August 2010 for further investigation and treatment for suspected Nutcracker syndrome based on her medical history and the recurrent gross hematuria.

Computed tomography (CT) imaging revealed compression of the left renal vein between the aorta and the superior mesenteric artery and cystoscopy revealed bloody urine from the left ureteric orifice. Ureteroscopy revealed diffuse bleeding from the renal pelvic mucosa. The cytodiagnosis of urine was Class II. She developed left flank pain and further recurrent hematuria in July 2011 and sought active treatment by stenting at our hospital.

After we obtained the approval of the Ethical Review Board in our institution, we treated by endovascular stenting of the left renal vein. The venous phase of selective renal angiography during the procedure revealed dilation of the mid-renal vein with delayed flow into the inferior vena cava and tortuous dilated collateral vessels. Two E-LUMINEXX Vascular Stents (12 × 40 mm) were deployed at the stenotic site of the left renal vein via the right femoral vein. This strategy improved the stenosis and collateral vessels. No significant postoperative adverse events developed other than dull back pain that disappeared after a few days, and the patient was discharged on postoperative day 4.

CT findings three months after the procedure confirmed resolution of the left renal vein compression. Six months post-procedure, the patient had no left flank pain or further hematuria.

(Jpn. J. Urol 104(6): 716-719, 2013)

Keywords: Nutcracker syndrome, Left renal vein, Intra vascular stenting

Received: March 12, 2013, Accepted: April 16, 2013

© 2013 The Japanese Urological Association