バルーン拡張術を行った Nutcracker 症候群の 1 例

内田 智夫

●要 約：Nutcracker 症候群は左腎静脈が上腸間膜動脈と腹部大動脈の間で圧迫されることにより、骨盤内鬱滞症状を生じるまれな疾患である。バルーン拡張術により症状改善がえられた症例を経験したので報告する。症例は 52 歳女性。左下腹部の痛みを主訴に当院を受診。腹部 CT 検査により著明な左卵巢静脈瘤を伴う骨盤内鬱滞症候群と診断した。Nutcracker distance は 3 mm で上腸間膜動脈と腹部大動脈の角度は 13 度であった。右大腿静脈アプローチによりバルーン拡張術を行った。MUSTANG 8 mm×40 mm を使用し、6 気圧で狭窄部を拡張したところ圧較差は治療前 4 mmHg であったが拡張後ほぼ消失した。治療後約 1 年経過したが、現在のところ自覚症状は改善している。左腎静脈転位手術や自家腎移植術は侵襲が少なくはない。ステント留置やコイル塞栓術による治療報告があるが、長期に異物を体内に留置することによる諸問題が懸念される。再狭窄の可能性はあるが、侵襲が少なく繰り返し治療が可能なバルーンカテーテルによる拡張術は妥当な治療法と考える。

●索引用語：Nutcracker 症候群，骨盤内鬱滞症候群，上腸間膜動脈症候群，バルーン拡張術

静脈学 2016；27(1)：33-37

はじめに

Nutcracker 症候群は左腎静脈が上腸間膜動脈と腹部大動脈の間で圧迫されることにより、血尿や骨盤内鬱滞症状を生じる比較的まれな疾患である。今回、バルーン拡張術により症状改善がえられた症例を経験したので報告する。

症 例

症 例：52 歳，女性

入院時現症：身長 157 cm，体重 46 kg BMI 18.7

既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2014 年 5 月ごろより，左下腹部の痛みが出現。6 月下旬，近医整形外科を受診。骨盤，腰椎 X 線撮影で

はとくに異常を認めず。3 日後，紹介されて当院内科受診。

体表には異常なし。血液，尿検査は異常なし。7 月上旬，腹部 CT 検査施行したところ，左腎静脈が上腸間膜動脈と腹部大動脈の間で圧迫され，著明な左卵巢静脈瘤を発症していることによる骨盤内鬱滞症候群と診断した (Fig. 1)。腹部大動脈と上腸間膜動脈との間の距離 (Nutcracker distance) は 3 mm (Fig. 2) で上腸間膜動脈と腹部大動脈の角度 (分岐角度) は 13 度であった。4 日後，血管外科へ紹介受診。

治 療：9 月中旬，右大腿静脈より 6Fr. シースを挿入し 4Fr. コブラヘッドカテーテルを左腎静脈へ誘導し造影したところ，造影剤はほとんどが卵巢静脈を逆行性に末梢側へ流れることが確認された (Fig. 3)。引き抜きながら静脈圧を測定したところ，圧較差は 4 mmHg であった。続いてヘパリン 5000 単位静注後，MUSTANG 8 mm×40 mm を使用し，最大 6 気圧で 1 分間，計 5 回狭窄部を拡張した (Fig. 4)。拡張後の圧較差はほぼ消失した。造影検査でも血流が順行性に改善したことを確認し

水戸赤十字病院血管外科

受付：2015 年 8 月 22 日 受理：2015 年 12 月 24 日

本論文の要旨は第 35 回日本静脈学会 (2015 年 7 月，奈良) で発表した

doi: 10.7134/phlebol.15-09

Fig. 1 Computed tomographic scan reveals left renal vein compression between the superior mesenteric artery and the aorta with dilatation and permanent reflux in the left ovarian vein.

Fig. 2 Axial computed tomogram showing compression of the left renal vein between the superior mesenteric artery and the abdominal aorta. Nutcracker distance is 3 mm.

て終了した(**Fig. 5**)。術後の抗血小板剤投与や抗凝固療法はとくに行わなかった。治療前のCT(**Fig. 2**)と治療後1カ月のCT(**Fig. 6**)で比較すると Nutcracker distance は 3 mm から 5 mm に、左腎静脈の最大径は 13 mm から 11 mm に、左卵巣静脈最大径は 12 mm から 9 mm に改善した。なお、治療前後に超音波検査も施行したが正確な病変部位の描出評価が困難であった。

経 過：症状出現時には腹臥位をとるよう生活指導を行った。治療後約1年経過した現在、体重は 47 kg と微

Fig. 3 Renal venography demonstrating the left renal vein reflux into the dilated left ovarian vein.

Fig. 4 Balloon angioplasty was performed by MUSTUNG 8 mmx40 mm at the maximum pressure of 6 mmHg.

増にとどまっているが、自覚症状は改善している。

考 察

左腎静脈が上腸間膜動脈と腹部大動脈の間で圧迫されることにより、血尿や下腹部痛などの骨盤内鬱滞症状を生じる現象は、1950年に El-Sadr ら¹⁾によって報告さ

Fig. 5 Renal venography after the balloon angioplasty reveals normal flow.

Fig. 6 CT one month after the balloon angioplasty. Nutcracker distance changed to 5 mm and the dilatation of the left renal vein diminished.

れ、その後 1972 年に de Schepper ら²⁾によって Nutcracker 症候群と命名された³⁾。性差、年齢については報告により一致しないが、やせ形の中年女性に多い傾向があり、本症例もそれに一致する^{4,5)}。血尿を主訴に発見された Nutcracker 症候群が多いが⁶⁾、本症例は血尿は認めず、左下腹部の鈍痛が主訴であった。その他、蛋白尿や精巣静脈瘤を合併した報告もある^{7,8)}。

上腸間膜動脈症候群は Nutcracker 症候群と同様に十二指腸水平脚が上腸間膜動脈と腹部大動脈により圧迫されて嘔吐などの消化管通過障害を来す疾患であるが、本症

例では消化器症状はなかった。上腸間膜動脈症候群と Nutcracker 症候群を合併した報告⁹⁾はまれで、多くの症例では狭窄部位が微妙に違うため両者を合併することは少ないようである¹⁰⁾。

診断は 3D CTA がきわめて有用である。Fu ら¹¹⁾の報告によれば健康正常人では Nutcracker distance は 12 ± 1.8 mm, 分岐角度は 90 ± 10 度に対し Nutcracker 症候群ではそれぞれ 3.1 ± 0.2 mm, 39.3 ± 4.3 度であった。左腎静脈圧迫部前後の圧較差は、健康正常人では 1 mmHg 以下とされており¹²⁾、Nutcracker 症候群の診断基準として 3~4 mmHg 以上としている場合が多い^{9,13)}。卵巣静脈の正常時の径は 3~4 mm で、逆流するようになると 10 mm 以上となる¹⁴⁾。本症例の Nutcracker distance は 3 mm, 分岐角度は 13 度, 圧較差は 4 mmHg, 左卵巣静脈径は 12 mm であった。諸家の報告と比較して圧迫の状態は概ね同程度であると思われる。診断法として超音波検査も有用であるが熟練を要す。

Nutcracker 症候群に対する古典的な手術法として左腎静脈転位手術^{11,15)}、自家移植⁸⁾のほか外ステント術の報告がある¹⁶⁾。近年になって腹腔鏡下による卵巣静脈結紮術¹⁷⁾、シャント手術などの報告もある。しかし、これらの方法は手術侵襲が少なくはなく、左腎静脈転位手術後の再閉塞の報告もある¹⁵⁾。近年では侵襲の少ないカテーテル治療によるステント留置の報告が散見されるようになった^{13,18-20)}。使用したステントは自己拡張型の報告が多いが、サイズは 14 mm×60 mm, 16 mm×50 mm, 18 mm×40 mm などさまざまである¹⁸⁻²⁰⁾。ステントの移動を避けるため太いサイズが選択されることが多いが、本症例では拡張のみの目的であり細い 8 mm のバルーンを使用した。長期留置の経過は不明な点が多く、下大静脈や右房へのステントの移動、破損、内膜肥厚などを生じて再度処置を必要とすることもある^{12,13,19,21)}。なお、カテーテル穿刺部としては右頸静脈からの方が経路が直線化して望ましいとする報告もある¹⁹⁾。本症例は右大腿静脈穿刺で行ったが、とくに支障はなかった。

骨盤内うっ滞症候群は機械的因子や内分泌因子などにより卵巣静脈瘤を生じ、主に片側性的下腹部不快感、疼痛などが出現する女性にみられる疾患である¹⁴⁾。これに対して最近では塞栓術による治療報告が認められる。しかし、Nutcracker 現象を伴う場合は卵巣静脈瘤の塞栓術は原因の根本治療とはいえず、議論のあるところと思われる。

バルーン拡張術単独では再狭窄を来しやすいと推測されるが、成人に対してのバルーン拡張術単独での治療報

告やステント留置術とを比較した報告はほとんど見当たらない。小児は成長するため安易なステント留置は避けるべきでバルーンカテーテル単独による治療の良い適応と考えられ、小児の治療報告がある²²⁾。

ステント留置術やコイル塞栓術は有害事象もありえること、バルーンカテーテルによる拡張術では再狭窄の可能性はあるが、侵襲が少なく繰り返し治療が可能であることを患者に説明し同意を得たので上記の治療をおこなった。Nutcracker 症候群に対するバルーン拡張術は適切な治療法と考える。

利益相反

本論文の発表に関して、申告すべき利益相反はない。

文 献

- 1) EL-SADR AR, MINA E: Anatomical and surgical aspects in the operative management of varicocele. *Urol Cutaneous Rev* 1950; **54**: 257-262
- 2) de Schepper A: ["Nutcracker" phenomenon of the renal vein and venous pathology of the left kidney]. *J Belge Radiol* 1972; **55**: 507-511
- 3) 松本賢治, 渋谷慎太郎, 村山剛也, 他: 血管外科に関するターミノロジー Nutcracker phenomenon. *血管外科* 2001; **20**: 37-39
- 4) Gulleroglu K, Gulleroglu B, Baskin E: Nutcracker syndrome. *World J Nephrol* 2014; **3**: 277-281
- 5) Orczyk K, Labetowiz P, Lodzinski S, et al : The nutcracker syndrome- morphology and clinical aspects of the important vascular variations: a systematic study of 112 cases. *Int Angiol* 2015; (Epub ahead of print)
- 6) 神田 慈, 松尾栄之進, 平尾幸一, 他: 中高年者の血尿における Nutcracker 現象の臨床的意義について. *腎と透析* 1991; **31**: 449-452
- 7) 酒井信子, 川崎幸彦, 知識美奈, 他: 著明な起立性蛋白尿を呈したナットクラッカー症候群の1男児例. *小児科臨床* 2009; **62**: 1099-1103
- 8) 竹澤健太郎, 中澤成晃, 米田 傑, 他: 精索静脈瘤破裂を来したナットクラッカー症候群に対し自家腎移植を施行した1例. *泌尿器科紀要* 2011; **57**: 213-216
- 9) Inal M, Unal Daphan B, Karadeniz Bilgili MY: Superior mesenteric artery syndrome accompanying with nutcracker syndrome: a case report. *Iran Red Crescent Med J* 2014; **16**: e14755
- 10) 渡辺慎子, 山名大吾: SMA syndrome と Nutcracker syndrome 発症要因の検討. 両者はなぜ合併することが少ないか? *共済医報* 2012; **61**: 339-344
- 11) Fu WJ, Hong BF, Gao JP, et al: Nutcracker phenomenon: a new diagnostic method of multislice computed tomography angiography. *Int J Urol* 2006; **13**: 870-873
- 12) Wang X, Zhang Y, Li C, et al: Results of endovascular treatment for patients with nutcracker syndrome. *J Vasc Surg* 2012; **56**: 142-148
- 13) 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
- 14) 佐藤彰治: 骨盤内うっ滞症の解剖とエコー所見. *Vascular Lab* 2013; **10**: 37-40
- 15) 石橋宏之, 太田 敬, 杉本郁夫, 他: ナットクラッカー症候群(左腎静脈捕捉症候群)に対する左腎静脈転位術の手術経験. *静脈学* 2002; **13**: 217-222
- 16) 吉村耕一, 古谷 彰, 竹中博昭, 他: 左腎静脈捕捉症候群に対する左腎静脈外ステント留置術. *静脈学* 2003; **14**: 247-252
- 17) Viriyaroj V, Akranurakkul P, Muyphuag B, et al: Laparoscopic transperitoneal gonadal vein ligation for treatment of pelvic congestion secondary to Nutcracker syndrome: a case report. *J Med Assoc Thai* 2012; Suppl 12: S142-145
- 18) 熱田義顕, 森本典雄, 笹嶋唯博: 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. *日本血管外科学会雑誌* 2003; **12**: 35-38
- 19) Rana MA, Oderich GS, Bjarnason H: Endovenous removal of dislodged left renal vein stent in a patient with nutcracker syndrome. *Semin Vasc Surg* 2013; **26**: 43-47
- 20) 長崎和仁, 朝見淳規, 白杉 望: Nutcracker syndrome に対して腎静脈ステント留置術を施行した1症例. *血管外科* 2015; **34**: 45-49
- 21) Chen Y, Mou Y, Cheng Y, et al : Late stent migration into the right ventricle in a patient with nutcracker syndrome. *Ann Vasc Surg* 2015; **29**: 839.e1-4
- 22) Takahashi Y, Sano A, Matsuo M: An effective "transluminal balloon angioplasty" therapy for pediatric chronic fatigue syndrome with nutcracker phenomenon. *Clin Nephrol* 2000; **53**: 77-78

Abstract

**Nutcracker Syndrome with Pelvic Congestion Treated by Balloon Angioplasty:
Report of a Case**

Norio Uchida

Department of Vascular Surgery, Mito Red Cross Hospital

Key words: Nutcracker syndrome, pelvic congestion syndrome, balloon angioplasty

Nutcracker syndrome is the term used to describe the patient with clinical symptoms of entrapment of the left renal vein between the aorta and the superior mesenteric artery. Pelvic congestion syndrome, which is a cause of chronic pelvic pain in women, may be due to Nutcracker syndrome. There are many modalities of treatment of Nutcracker syndrome. This is a case report of a woman with pelvic congestion syndrome due to Nutcracker syndrome, who subsequently underwent balloon angioplasty of the left renal vein. A 52-year-old premenopausal woman with no medical history presented to us with left flank pain. Physical examination, blood test and urinalysis were normal. Computed tomography eventually revealed engorged left renal and ovarian veins due to compression between the superior mesenteric artery and the abdominal aorta, consistent with Nutcracker syndrome. A percutaneous endovascular procedure was performed under local anesthesia. After ultrasound-guided puncture, a sheath was introduced into the right femoral vein. A multipurpose catheter was directed into the left renal vein and a diagnostic renal venogram was performed. Hemodynamic assessment confirmed a pressure gradient 4 mmHg between the left renal vein and the inferior vena cava. Balloon angioplasty was performed by MUSTUNG 8 mm×40 mm at the maximum pressure of 6 mmHg. Subsequent clinical follow-ups ensure full resolution of the patient's symptoms. Antiplatelet or anticoagulant therapy was not used after the balloon angioplasty. She has had complete remission of pain for one year after the procedure. There are some case reports of stent migration into the inferior vena cava or the right ventricle after stent placement in patients with Nutcracker syndrome. There is a possibility of restenosis, however, balloon angioplasty is a more safe and minimally invasive technique for the treatment of Nutcracker syndrome rather than metallic stent. Nutcracker syndrome, while rare, should be suspected in patients with persistent flank pain.