

腎動静脈奇形に対してバルーン下逆行性経静脈塞栓術を施行した一例

長崎大学病院泌尿器科・腎移植外科¹⁾ 長崎大学病院放射線科²⁾中村 公隆^{*1)}・伊藤 秀徳¹⁾・上田 康史¹⁾・迎 祐太¹⁾・光成 健輔¹⁾松尾 朋博¹⁾・大庭 康司郎¹⁾・宮田 康好¹⁾・酒井 英樹¹⁾・末吉 英純²⁾

(受付日: 2021 年 11 月 28 日, 受理日: 2021 年 12 月 15 日)

抄録:

腎動静脈奇形 (Arteriovenous malformation: AVM) は比較的な稀な疾患で, 造影 CT で診断される。腎 AVM は流入動脈と流出静脈が多数存在する Cirroid type, 流入動脈と流出静脈が 1 つ存在する Aneurysmal type に分類される。臨床所見として高血圧, 血尿, 腹痛を呈し, 病態の進行とともに Cirroid type では肉眼的血尿を, Aneurysmal type では息切れや心不全などの循環器症状をきたすことがある。治療に関しては, 外科的治療 (腎摘出術, 流入血管の結紮術, 自家腎移植術など) がこれまでに報告されているが, 安全性や有効性の観点から, 血管内治療が主流になっている。今回我々は Cirroid type の腎 AVM に対して, バルーン下逆行性経静脈の塞栓術 (Balloon-Occluded Retrograde Transvenous Obliteration: BRTO) を施行した症例を経験したので, 文献的考察を踏まえ報告する。 (西日泌尿. 84: 285-290, 2022)

キーワード: 腎動静脈奇形, バルーン下逆行性経静脈塞栓術

緒 言

AVM は高血圧, 血尿, 腹痛をきたす比較的な稀な疾患である。AVM に対する治療は安全性や有効性の観点から, 血管内治療が主流になっている。今回我々は Cirroid type の腎 AVM に対して, BRTO を施行した一例を経験したので報告する。

症 例

患者 63 歳, 女性**主訴** 症候性肉眼的血尿**既往歴** 脳梗塞, 胆石症, 高血圧症**内服薬** クロピドグレル, オルメサルタン, アムロジピン

現病歴 20XX 年 10 月, 肉眼的血尿を自覚し, A 病院受診。単純 CT で左腎盂内に腫瘍性病変が疑われたため, 精査加療目的に B 病院泌尿器科へ紹介となった。膀胱鏡検査では明らかな腫瘍性病変はなく, 左尿管口から血尿の噴出を認めた。造影 CT を施行し, 腎盂内に明らかな腫瘍はなく, 左腎 AVM の診断となった。腎 AVM の症状として疼痛, 血尿を認めたが, 他に発熱や炎症反

応の上昇を認めたことから尿路感染症の併発も疑い抗生剤にて加療開始。しかし, 疼痛コントロール不良および血尿による進行性の貧血が持続したため, 左腎 AVM に対する血管内治療の適応と判断し, 治療目的に当科転院となった。

初診時現症 身長 160 cm, 体重 40.4 kg, 体温 38.8℃, 血圧 117/74 mmHg, 脈拍 96 回/分, 整, 左腰部痛あり

血液学的検査 血液一般: WBC 7600/ μ L, RBC 310 $\times 10^4$ / μ L, Hb 8.7 g/dL, Ht 25.6%, PLT 352 $\times 10^4$ / μ L, 血液生化学: TP 6.6 g/dL, Alb 3.1, g/dL, T-Bil 0.2 mg/dL, AST 18 U/L, ALT 23 U/L, G-GTP 27 U/L, BUN 19 mg/dL, Cre 1.06 mg/dL, CRP 1.09 mg/dL, Na 134 mmol/L, K 3.8 mmol/L, Ca 8.6 mg/dL, PT-INR 1.09, APTT 30.0 Sec

尿沈査 尿中 RBC > 100/HPF, 尿中 WBC 20-29/HPF, 細菌 1+

尿細胞診 陰性 (Negative)

画像検査 膀胱鏡: 明らかな腫瘍なし, 左尿管口より血尿の噴出を認めた。造影 CT: (3D-CT) 早期相で左腎に多数の静脈瘤, 拡張した左腎静脈を認め, 左腎動脈下極枝には約 2 cm 大の動脈瘤を認めた (Fig. 1)。(4D-CT) 左腎静脈末梢に流出する静脈は 1 カ所であった。

* 〒 852-8501 長崎県長崎市坂本 1-7-1
TEL 095-819-7340, FAX 095-819-7343
E-mail: kmtk.com@icloud.com

入院後経過 入院時採血では貧血が持続し、疼痛コントロール不良であることから、放射線科と協議し、入院翌日に血管内治療の方針となった。

血管造影及び血管内治療 右大腿動脈から Flexor Ansel Guiding Sheath® (5 Fr, 55 cm) を左腎動脈内に、右大腿静脈からエスワンシース® (8 Fr, 45 cm) を左腎静脈内にそれぞれ留置した。次に左腎動脈を造影し AVM の形状、異常な血管ネットワーク (nidus) を確認後 (Fig. 2), 静脈シース内より 6 Fr ガイディングカテーテルおよび 3.3 Fr マイクロバルーンカテーテルを挿入し、左腎静脈への流出路に到達させた。さらに、マイク

ロバルーンで流出路を閉塞させたうえで左腎動脈 (流入路) 側から造影したところ、静脈瘤や早期灌流の消失が確認された (Fig. 3)。そこで、同部から BRTO を行う方針となった。左腎静脈への流出路をマイクロバルーンで閉塞させ、静脈瘤内へ 5% モノエタノールアミンオレイン酸塩 (EOI) を 8 ml 注入した。10 分経過した時点で流

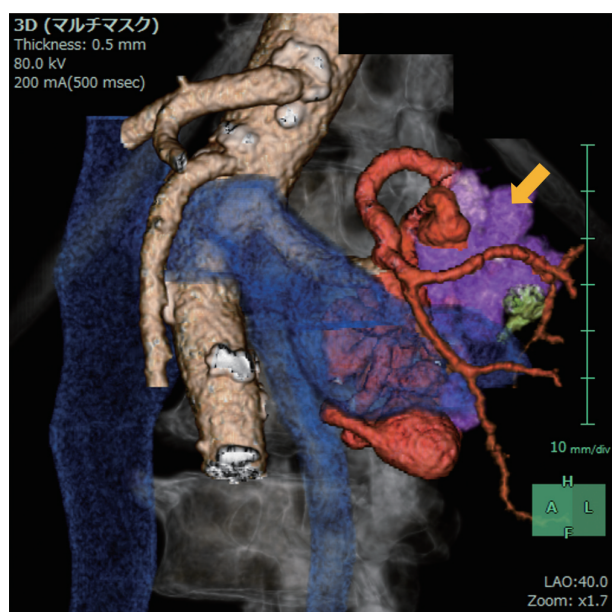


Fig. 1-1 3D-CT shows nidus (indicated by arrows), numerous varicose veins and dilation of the left renal vein. There is a single pathway that drains to the left renal vein.

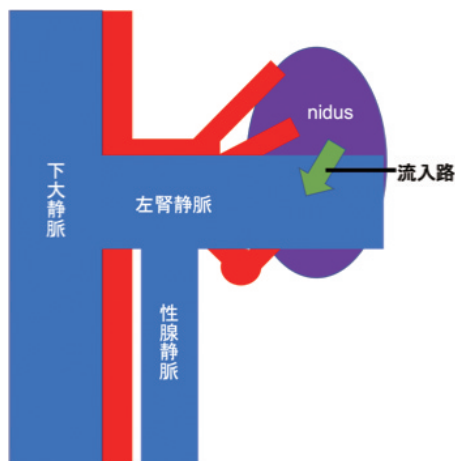


Fig. 1-2 Schema

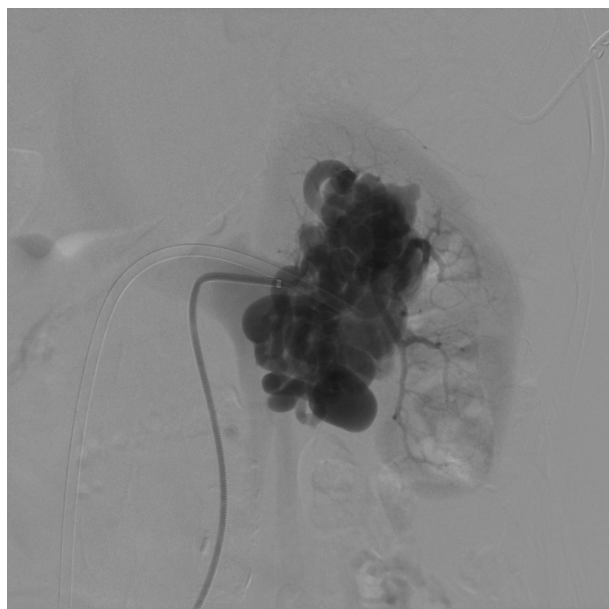


Fig. 2 Left renal angiography shows the AVM with early filling of the renal artery.



Fig. 3 Left renal angiography shows the disappearance of varicose veins after occlusion of the outflow tract with a micro balloon (indicated by arrows).

出路よりマイクロバルーンが逸脱し、静脈瘤に停滞していた 5%EOI が左腎静脈へ流出したが、呼吸困難やショックなど明らかな肺梗塞の症状はなかった。バルーン逸脱の原因として、動脈側からの血流が強いことを考えられた。右腎動脈上極枝をスチールステンレスコイル (RubyPOD 6 mm/50 cm, Ruby Packing coil® 30 cm) で塞栓を行った。次に左腎動脈下極枝を塞栓するため、ラジフォークスガイドワイヤーと 4-5 Fr カテーテルで操作していたところ、下極枝の流速が急速に停滞し、血栓化もしくは解離が疑われたが、のちに再開通した。右腎動脈上極枝の塞栓で nidus への血流が低下していたため、再度流出路をバルーン閉塞させて 5%EOI を 8 ml 注入した。バルーン逸脱は認めず、30 分後に nidus 内の血液を可能な限り回収してから、流出路のコイル塞栓を行った。改めて、左腎動脈を造影して早期灌流の消失を確認した (Fig. 4)。一部静脈瘤が残存していたが、シャントの閉塞が確認可能であった。

術後経過 術後 6 日目、Hb 値が 6.3 g/dL と低下を認めたため、赤血球濃厚液を 4 単位輸血した。造影 CT では軽度の後腹膜血腫を認め、血管内治療時の血管損傷や出血を疑われたが、明らかな extravasation はなく、活動性出血は認めなかった。また、血流の再開通はなく、AVM および静脈瘤は消失していた (Fig. 5)。術後 8 日目で Hb 8.9 g/dL と上昇し、血尿の消失、疼痛の改善を認めた。その後は経過良好であったため、術後 14 日目に退院となった。術後 1 年の時点で、血尿や疼痛などの

症状含め再発を認めていない。

考 察

正常の動脈と静脈は毛細血管を介して結合しているが、腎 AVM は毛細血管を経ずに、動静脈間が nidus を介しているものと定義されている^{1)~2)}。腎 AVM は先天性 (非外傷性) と後天性 (外傷性) に大きく分類される。後天性の原因としては、外傷の他に腎生検や腎腫瘍の部分切除の頻度が高い³⁾。非外傷性は形態的に Cirrroid type と Aneurysmal type に分類され、Cirrroid type の頻度が高い。Cirrroid type は流入動脈と流出静脈が多数存在するのに対し、Aneurysmal type は流入動脈と流出静脈が 1 つしか存在しないことが特徴である^{4)~6)}。共通の臨床所見として、血尿、膀胱タンポナード、側腹部痛などがある。Cirrroid type の場合、好発は 20~40 歳の女性が多く、臨床症状では肉眼的血尿の頻度が 45-72% と高い^{7)~8)}。一方、Aneurysmal type の場合、肉眼的血尿の頻度は 19% と少なく、過大な動静脈間のシャント血流のため、息切れや心不全など循環器症状を主訴とする場合が多い⁹⁾。腎 AVM の確定診断は造影 CT である。本症例は CT で腎盂腫瘍が疑われ、その後の造影 CT で腎 AVM の診断となったが、動静脈短絡部、nidus 周囲の血管を正確に診断することは困難であったため、3D-CT で再構成を行い、Fig. 1 のように血管走行を確認した。さらに 4D-CT (4 次元 CT) で経時的な変化を確認することにより、流出静脈が最終的に一カ所で



Fig. 4 BRTO and coil embolization was effective in causing the AVM to disappear.

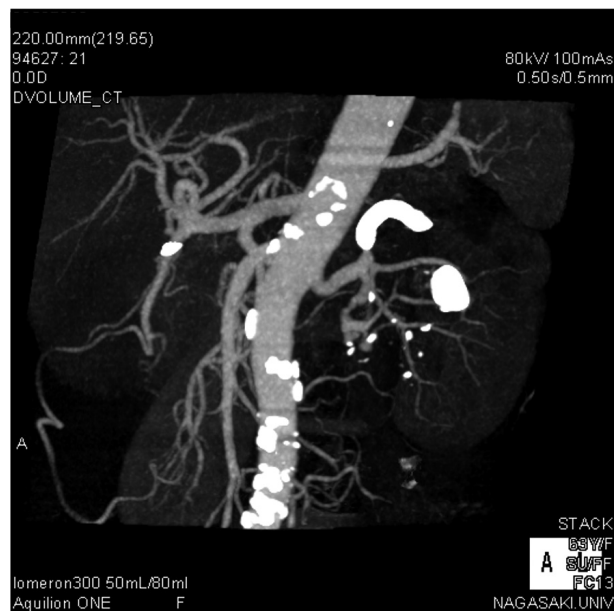


Fig. 5 Contrast-enhanced CT shows no obvious bleeding, and the AVM and varicose veins have disappeared.

あることがより明らかとなった。4D-CT は 320 列 CT のスキャン速度を利用することで、従来の 3 次元画像に時間軸が加わり、血行動態の評価が可能となる。経時的な血行動態を把握することで、より血管造影に近い情報を得て、事前に緻密な治療戦略を立てることができる。超音波ドップラーエコー断層法で腎 AVM を診断した報告もあるが¹⁰⁾、低侵襲の点でメリットはあるものの、血管走行の描出や評価が難しく、汎用性は低い。

次に腎 AVM の治療の最大の目的は、現存する腎機能を最大限に保持しつつ、症状とその血行動態への影響を改善させることである。一般的な治療方法としては血管内治療や外科的治療が挙げられるが、①血管が蛇行してカテーテル操作が困難な症例、②巨大な Cirroid type を有する症例、③悪性腫瘍に関連した症例、④血管内治療無効あるいは再発症例、これらに関しては、外科的治療を検討する必要がある¹¹⁾。外科的治療としては、流入動脈の結紮術や腎摘除術、自家腎移植術が行われる¹²⁾。1976 年に Wallace ら¹³⁾が Cirroid type の腎 AVM にスチールコイルを用いた経動脈塞栓術の応用を報告して以降、数多くの症例が報告されている^{14)~15)}。血管内治療において、AVM を効果的に治療するには nidus を閉塞することが重要である。血管内治療は、経動脈的塞栓術、経静脈的塞栓術、直接 nidus に穿刺して塞栓する方法がある。四肢 AVM に関しては皮膚表面に近く、エコーガイド下で直接穿刺することが多い¹⁶⁾。しかし、腎血管は後腹膜に存在し、その腎血管の周囲に腹部大動脈や下大静脈のような大血管があることから、直接穿刺は困難であるため、経動脈的塞栓術もしくは経静脈的塞栓術が選択される。

Cirroid type の AVM には形態分類があり、Type I, II, IIIa, IIIb の 4 型 (Fig. 6) に分けられ¹⁷⁾、最適な血管内治療の方法が選択される。Type I のような流入血管が 3 本以下の nidus では経動脈的塞栓術が検討されるが、複数の流入血管かつ極度の蛇行でカテーテル操作が困難な場合、また AVM の流入血管が以前の治療で閉塞している場合は、経静脈的塞栓術も検討される^{18)~20)}。

これまでに腎 AVM に対して経動脈的塞栓術が著効した症例が散見される。今回我々は経静脈的にアプローチを行う BRTO を施行した。本症例は Cirroid type であり、流入動脈が複数見られ、流出静脈が一カ所であったため、BRTO による硬化剤療法が適応となった。BRTO とは、破裂の危険性の高い静脈瘤やシャントが原因で、肝性脳症を来している場合に、静脈瘤やシャントを塞栓する治療法であり、主に胃静脈瘤に施行されている。BRTO は本症例のように液体塞栓物質である

5%EI (オレイン酸モノエタノールアミン) が主に使われている。この液体塞栓物質を nidus と側副血行路に充填させ、塞栓を行う。BRTO は他臓器の AVM にも施行されている。子宮 AVM の流入動脈が蛇行しており、カテーテルを治療部位に十分誘導できなかったため、BRTO を選択し効果的な塞栓ができたとの報告がある²¹⁾。またその他にも直腸 AVM にも同様の報告を認めている。しかし、文献検索した限りでは腎 AVM に対して、BRTO を施行した症例はなかった²²⁾。複数の流入動脈が多い症例、流入動脈が蛇行している症例、流出静脈が一カ所である症例などでは、BRTO が腎 AVM の

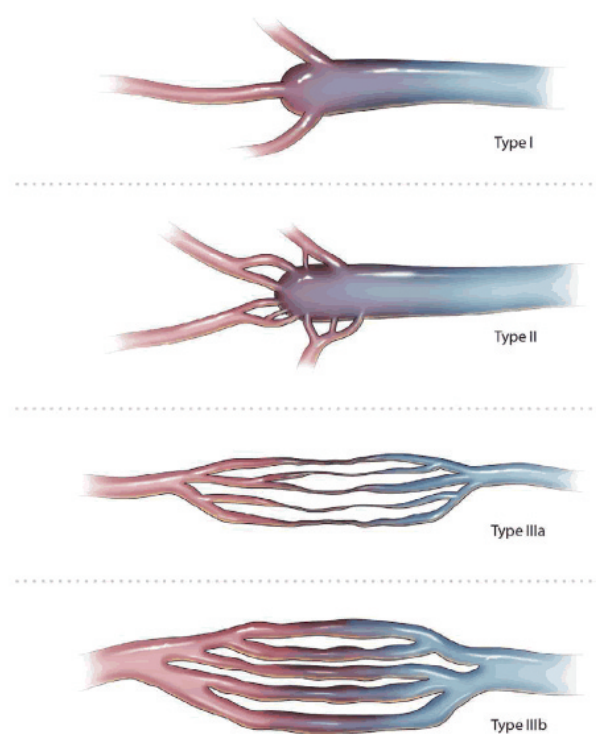


Fig. 6 A modified angiographic classification; A diagram for the 4 types of AVM based on nidus morphology. Type I (arteriovenous fistulae): no more than 3 separate arteries shunt to the initial part of a single venous component. Type II (arteriovenous fistulae): multiple arterioles shunt to the initial part of a single venous component, in which the arterial components show a plexiform appearance on angiography. Type IIIa (arteriovenous fistulae with non-dilated fistula): fine multiple shunts are present between arterioles and venules and appear as a bluish or fine striation on angiography. Type IIIb (arteriovenous fistulae with dilated fistula): multiple shunts are present between arterioles and venules and appear as a complex vascular network on angiography. In Types I and II, the first identifiable venous structure downstream of the shunt is the initial part of the draining vein. In Types IIIa and IIIb, multiple venous components of the fistula unit collect to a draining vein.

血管内治療の一つとなると考える。

結 語

腎動静脈奇形に対してバルーン下逆行性経静脈塞栓術をした一例を経験した。

文 献

- 1) Cura, M. et al.: Vascular malformations and arteriovenous fistulas of the kidney. *Acta Radiol.* **51**: 144-149, 2010.
- 2) Cho, K. J. and Stanley, J. C.: Non-neoplastic congenital and acquired renal arteriovenous malformations and fistulas. *Radiology.* **129**: 333-343, 1978.
- 3) 井上雅則: 腎動静脈奇形. 臨放. **63**: 1494-1499, 2018.
- 4) Ullian, M. E. and Molitoris, B. A.: Bilateral congenital renal arteriovenous fistulas. *Clin. Nephrol.* **27**: 293-297, 1987.
- 5) Takaha, M. et al.: Intrarenal arteriovenous malformation. *J. Urol.* **124**: 315-318, 1980.
- 6) Crotty, K. L. et al.: Recent advances in the diagnosis and treatment of renal arteriovenous malformations and fistulas. *J. Urol.* **150**: 1355-1359, 1993.
- 7) 平賀聖悟・他: Cirroid type 先天性腎動静脈奇形 --2 治験例と本邦 74 症例についての考察--。泌尿紀要. **30**: 1213-1223, 1984.
- 8) 竹林茂生: 腎血管性疾患. 臨放. **47**: 1374-1381, 2002.
- 9) 岡田義信・他: 高拍出性心不全を発症した先天性腎動静脈瘻の 1 例. 心臓. **37**: 672-677, 2005.
- 10) 木村昇紀・他: 超音波カラー Doppler 断層法により診断しえた腎動静脈奇形. 臨泌. **47**: 515-517, 1993.
- 11) Gandhi, S. P. et al.: Renal arteriovenous malformation presenting with massive hematuria. *Radiol. Case Rep.* **10**: 1068, 2015.
- 12) 佐々木雄太郎・他: 径 5 cm の腎静脈瘤を伴う腎動静脈瘻の 1 例. 泌尿紀要. **60**: 333-336, 2014.
- 13) Wallace, S. et al.: Therapeutic vascular occlusion utilizing steel coil technique: clinical applications. *AJR Am. J. Roentgenol.* **127**: 381-387, 1976.
- 14) 栗橋幸夫・他: Transcatheter embolization により治癒せる腎 arteriovenous malformation の 1 例. 臨放. **23**: 593-596, 1978.
- 15) 並木幹夫・他: 腎動静脈瘻の保存的治療の経験. 日泌尿会誌. **69**: 307-317, 1978.
- 16) 北川晃・他: 四肢動静脈奇形に対する血管内治療. 脈管学. **57**: 163-168, 2017.
- 17) Cho, S. K. et al.: Arteriovenous malformations of the body and extremities: analysis of therapeutic outcomes and approaches according to a modified angiographic classification. *J. Endovasc. Ther.* **13**: 527-538, 2006.
- 18) Do, Y. S. et al.: How do we treat arteriovenous malformations (tips and tricks)?. *Tech. Vasc. Interv. Radiol.* **10**: 291-298, 2007.
- 19) Do, Y. S. et al.: Ethanol embolization of arteriovenous malformations: interim results. *Radiology.* **235**: 674-682, 2005.
- 20) Jackson, J. E. et al.: Treatment of high-flow vascular malformations by venous embolization aided by flow occlusion techniques. *Cardiovasc. Intervent. Radiol.* **19**: 323-328, 1996.
- 21) Kishino, M. et al.: Retrograde transvenous obliteration for uterine arteriovenous malformation. *Obstet. Gynecol.* **123**: 427-430, 2014.
- 22) Jubashi, A. et al.: Successful retrograde transvenous embolization under balloon occlusion for rectal arteriovenous malformation. *Clin. J. Gastroenterol.* **14**: 594-598, 2021.

BALLOON-OCCLUDED RETROGRADE TRANSVENOUS OBLITERATION FOR THE TREATMENT OF RENAL ARTERIOVENOUS MALFORMATION

KIMITAKA NAKAMURA, HIDENORI ITO, YASUFUMI UEDA,
YUTA MUKAE, KENSUKE MITSUNARI, TOMOHIRO MATSUO,
KOJIRO OHBA, YASUYOSHI MIYATA AND HIDEKI SAKAI

Department of Urology, Nagasaki University School of Medicine, Nagasaki, Japan

EIJUN SUEYOSHI

Department of Radiology, Nagasaki University School of Medicine, Nagasaki, Japan

Abstract :

A 63-year-old woman with hematuria visited a nearby hospital and CT showed a mass within the left renal pelvis. She was referred to the Department of Urology in our hospital for investigation of the mass. Cystoscopy showed hematuria spurting from the left ureteral orifice and contrast-enhanced CT showed left renal arteriovenous malformation. The patient was then referred to our department for endovascular treatment. After inserting a catheter into the left renal vein outflow tract, blocking a micro balloon within the tract, and performing angiography from the left renal artery, we confirmed the disappearance of varicose veins. We decided to perform balloon retrograde transvenous embolization of the varicose veins. We injected ethanolamine oleate with iopamidol (EOI) into the veins. We confirmed the EOI every few minutes, but we showed that the balloon had deflated and that the EOI had leaked into the body circulation. There were no symptoms of pulmonary infarction such as dyspnea or shock. We considered the strong flow from the left renal artery as the cause of the balloon deviation, so we embolized the renal artery branch which had the strong flow by a coil. We blocked the micro balloon into the outflow tract and injected EOI into the area again. We were able to perform embolization of the renal vein outflow tract after 30 minutes. After the treatment, the patient showed a decrease in hemoglobin and we transfused four units of red blood cells. We checked contrast-enhanced CT, but there was no bleeding, and disappearance of the varicose veins could be verified. The patient left our hospital without any other problematic complications. It has been one year since the endovascular treatment, but there has been no recurrence.

(Nishinohon J. Urol. **84** : 285-290, 2022)

key words : renal arteriovenous malformation, balloon-occluded retrograde transvenous obliteration
