

# 発達した横隔膜により右腎動脈が圧排されたために 高血圧をきたしたと考えられた高校陸上選手の 1 例

前田咲弥子 山本伸也 牧石徹也

Unstable hypertension due to renal artery compression by the developed diaphragm  
in a 17-year-old athlete : a case report

Sayako MAEDA, Shinya YAMAMOTO, and Tetsuya MAKIISHI

Division of Nephrology, Otsu Red Cross Hospital, Shiga, Japan

## 要 旨

症例は 17 歳、男子高校生。中学生時から短距離走の陸上選手。学校検診で 2 年続けて高血圧(162/72 mmHg, 144/78 mmHg)と蛋白尿を指摘され受診した。腎機能は正常で安静時蛋白尿は陰性、内分泌学的検査も正常だったが、腎動脈超音波ドプラ法と腎動脈 3D-CT angiography で、外部(発達した横隔膜脚)からの圧排による右腎動脈起始部の狭窄が疑われた。腎血管性高血圧を疑い腎動脈血管造影を行った結果、右腎動脈が腹腔動脈と上腸間膜動脈の間、左側腎動脈よりも高位で分岐する anomaly があり、発達した横隔膜右脚が右腎動脈根部を圧排し、右腎動脈の 50% の狭窄と狭窄部の圧較差 20 mmHg を確認したため右腎動脈狭窄症と診断した。呼吸性変動を調べたところ、本症例では呼気に肺が縮み、腹部が前後に狭くなり、腎動脈が後方からより強く圧迫されていた。末梢血 plasma renin activity (PRA) の上昇はなく、選択的腎静脈サンプリングでも PRA 値の左右差はなかったが、外部からの腎動脈圧排が続く体位のときや、激しい運動によって酸素需要が高まったときに一時的にレニン分泌が起こり、不安定な高血圧を示すのではないかと推察した。治療は、外部からの圧排であるため経皮的血管形成術は使用できず、血管内ステント留置も破損の報告が多いため、今回は侵襲的治療を行わず腹部超音波で経過観察することにした。腎動脈が横隔膜により狭窄して起こる腎血管性高血圧の報告は非常に珍しいが、腹腔内血管の entrapment syndrome の一つとして捉え、腹腔動脈や上腸間膜動脈の狭窄の有無や血管造影検査のときの撮影の方向や呼吸性変動も考慮に入れて評価することが必要である。

A 17-year-old high school boy was admitted to our hospital because of hypertension. Doppler ultrasound of the renal arteries and 3D-CT angiography showed a stenosis of the right renal artery, which was pushed against the aorta by the right crus of the diaphragm. He underwent aortography and selective renal arteriography. His right renal artery originated from the aorta at a higher level than the left renal artery, between the celiac artery and the superior mesenteric artery. Renal arteriography confirmed a 50% reduction in diameter (stenosis) of the proximal right renal artery entrapped by the right diaphragmatic crus. This pathology, unlike common renal artery stenosis, sometimes requires surgical decompression or an aortorenal bypass graft, because renal angioplasty with stenting is reported to be at risk of complication by a fracture of the stent. However, the patient rejected surgical decompression for fear of deterioration of his athletic ability. Therefore we decided to follow up his blood pressure and renal size by ultrasound every six months.

Renovascular hypertension caused by diaphragmatic entrapment is a very rare disease. The diagnosis may be overlooked easily at angiography if optimal views are not obtained. It is important to display images of the renal arteries, the celiac artery and the superior mesenteric artery in both inspiration and expiration.

**Key words** : renal artery, diaphragm, renovascular hypertension, compression, entrapment

## はじめに

学校検診で発見された 17 歳男子の高血圧の原因を精査したところ、発達した横隔膜脚によって右腎動脈が圧迫され狭窄したためと思われた稀な症例を経験したので報告する。

## 症 例

**患 者** : 17 歳, 男子高校生

**主 訴** : 高血圧, 尿蛋白陽性の精査

**既往歴** : 13 歳右肩関節脱臼・靭帯損傷

**家族歴** : 祖母 ; 膵臓癌, 高血圧, 祖父 ; 心筋梗塞

**現病歴** : 生来健康。中学から短距離走の陸上選手でスポーツによる大学進学を目指して毎日部活動に励んでいた。2008 年 9 月の学校検診で血圧が 162/72 mmHg だったため自宅近くの総合病院を受診したが, 受診時に血圧が正常だったため問題はないとされた。翌 2009 年 4 月, 学校検診で再度高血圧 (144/78 mmHg) と尿蛋白 2+ だったため, 精査目的で当院を紹介され受診した。

**入院時現症** : 身長 179 cm, 体重 76.8 kg, 体脂肪率 6.6 %, 血圧 126/76 mmHg, 脈拍 56/分整, 呼吸 12/分整, 体温 36.3 °C, 眼瞼結膜貧血なし, 眼球結膜黄疸なし, 心音雑音なし,

呼吸音異常なし, 腹部圧痛なし, 腹部血管雑音なし, 四肢浮腫なし, 表在リンパ節触知せず, 皮膚紫斑なし

**入院時検査所見** (Table 1, 2) : 胸部 X 線撮影 : 心胸比 44 %, 心電図 : 47/分, 洞性徐脈, 右軸偏位。腹部超音波検査で腎の大きさは右 10.4 cm, 左 10.3 cm で左右差はなく, 形態異常もなかったが, 右腎動脈の起始部が外部 (非常に発達した横隔膜) から圧迫されていた。超音波ドプラ法で計測したところ右側のみ V max の上昇がみられた (Fig. 1)。そこで 3D-CT angiography を撮影したところ, 右腎動脈が左腎動脈より高位で分岐し, 発達した右横隔膜脚により外部から圧迫されていた (Fig. 2)。その後数カ月間自宅で安静時の家庭血圧を記録したところ, やはり 130~140 台/80~90 台 mmHg で軽症高血圧と考えられた。さらに腎動脈狭窄の部位と性状を精査するため, また複数腎動脈が検査を受けた患者の 1~3 割に存在するといわれているため, 腎動脈狭窄診断のゴールドスタンダードである腎動脈造影検査を行った。その結果, 大動脈・腎動脈の壁不整はなく, 左右とも腎動脈は 1 本で, ①右腎動脈の高位分岐異常, ②右腎動脈は外部からの圧迫を受け 50 % の狭窄, 特に呼吸状態での引き抜き圧が狭窄部前 148/86 mmHg, 狭窄部後 128/77 mmHg (狭窄部前後の圧較差 20 mmHg) だったため右腎動脈狭窄と診断した。腎静脈サンプリングによるレニン活性は右腎静脈 4.8 ng/mL/hr, 左腎静脈 5.2 ng/mL/hr で

**Table 1. Laboratory findings on admission (1)**

Blood cell count		Blood chemistry			
RBC	441 × 10 <sup>4</sup> /μL	GOT	17 IU/L	TP	6.8 g/dL
Hb	13.3 g/dL	GPT	13 IU/L	Alb	4.3 g/dL
Ht	38.2 %	LDH	176 U/L	CHE	243 IU/L
WBC	6,800/μL	γ-GTP	13U/L	T-Cho	189 mg/dL
Neutro	77.3 %	T. Bil	0.4 mg/dL	BS	93 mg/dL
Eosin	0.9 %	CPK	120 IU/L	HbA <sub>1c</sub>	5.1 %
Baso	0.3 %	AMY	48 IU/IX	CRP	1.7 mg/dL
Mono	7.1 %	UA	5.1 mg/dL		
Lymph	14.4 %	BUN	13.0 mg/dL		
Plt	22.5 × 10 <sup>4</sup> /μL	Cre	0.9 mg/dL		
		Na	141 mEq/L	HBs-Ag	(-)
		K	4.3 mEq/L	HCV-Ag	(-)
		Cl	104 mEq/L	TP-Ag	(-)
		Ca	9.7 mg/dL		

Table 2. Laboratory findings on admission (2)

Serological study		Others		Urinalysis	
IgG	847 mg/dL	PRA	1.9 ng/mL/hr	Ph	7.0
IgA	99 mg/dL	Aldosterone	80.5 pg/mL	Gravity	1.014
IgM	60 mg/dL	Cortisol	7.8 $\mu$ g/dL	Protein	(-)
C3	113 mg/dL	Adrenaline	43 pg/mL	Glucose	(-)
C4	32 mg/dL	Noradrenaline	297 pg/mL	OB	(-)
CH50	42.7 U/mL	Dopamine	10 pg/mL	U-NAG	1.7 U/L
ASO	86 IU/mL			UP/Cr	0.07
RF	1 IU/mL	TSH	1.3 $\mu$ IU/mL	Cryoglobulin	(-)
ANA	<40	FT3	2.7 pg/mL	Urine sediment	
AntiDNA-Ab	(-)	FT4	1.4 ng/dL	RBC	0~1/HPF
MPO-ANCA	<10			WBC	0~1/HPF
				Epithelial cast	(-)
				Other cast	(-)
Coagulation				Ccr	90.4 mL/min
PT(INR)	1.01			Protein	0.08 g/day
APTT	24.3 sec				

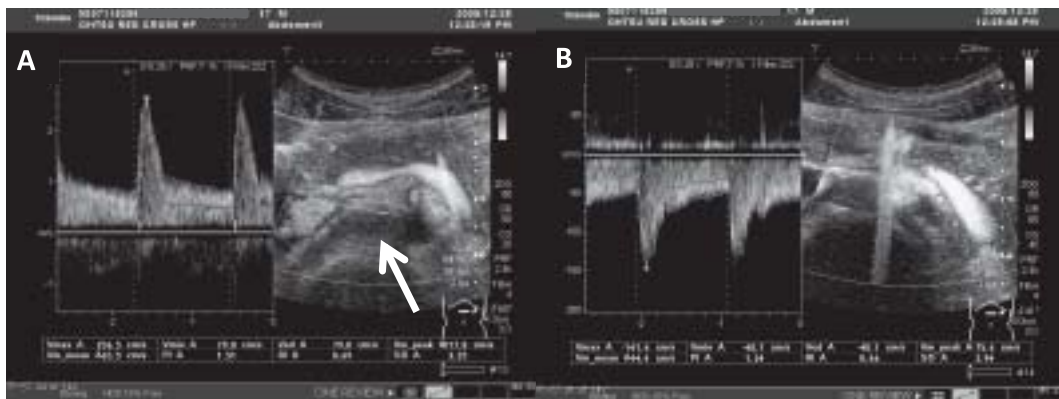


Fig. 1. Doppler ultrasound of the renal arteries

A : Right renal artery : V max 256.5 cm/S

B : Left renal artery : V max 141.6 cm/S

The arrow shows the right diaphragmatic crus.

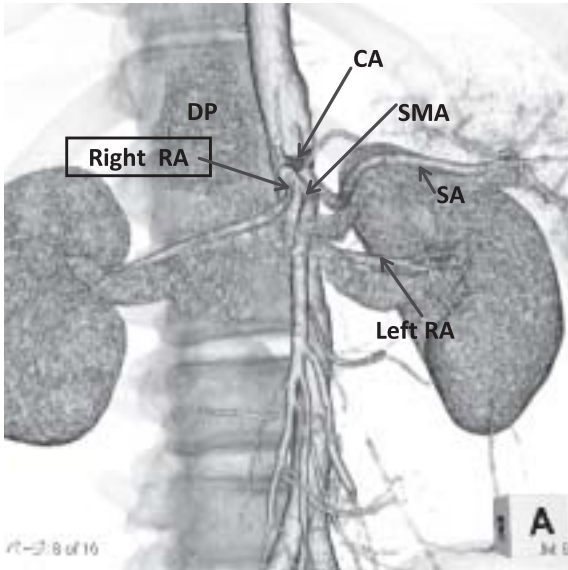
左右差はなかった (Fig. 3)。呼吸運動による差をみるため、吸気と呼気で造影 CT を撮影した結果、本症例では吸気に横隔膜は厚くなるが、呼気に肺が縮み、腹部が前後に狭くなり、むしろ腎動脈が後ろからより圧迫されていた (Fig. 4)。

## 考 察

腎血管性高血圧とは、腎動脈の狭窄あるいは閉塞病変により高血圧を呈するものと定義され、腎血行再建の結果血圧が正常化することにより診断が確定する。狭窄の原因は、中高年に多い粥状動脈硬化と若年者に好発する線維筋性異

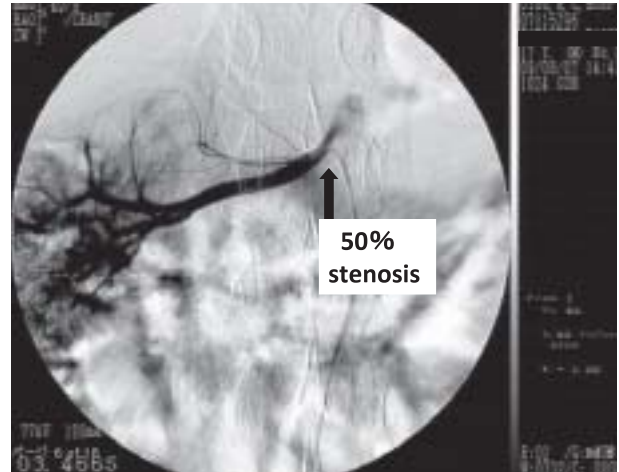
形成 (fibromuscular dysplasia : FMD) が主要なものであり、若年女性に多い大動脈炎症候群や先天奇形、腎動脈瘤などもある。

横隔膜は、起始部の異なる 3 群の筋束 (腰椎部、肋骨部、胸骨部) が円蓋を形成しながら腱中心に集まり、胸腔と腹腔の境界となっている腱状筋である。腰椎部は内側脚と外側脚に分けられ、内側脚は第 1~4 腰椎体前面から起り、右脚と左脚から成り、第 1 腰椎体の前で腱弓を作り、大動脈裂孔の前面と側面を形成している。この腱弓の部分 median arcuate ligament (正中弓状靭帯) と呼んでいる。median arcuate ligament による腹腔動脈の内腔の狭小化と血流の低下が原因で、食後の腹痛、腹部の血管雑音、体重



**Fig. 2. 3D-CT angiography**

CA : celiac artery, SMA : superior mesenteric artery, Right RA : right renal artery, Left RA : left renal artery, SA : splenic artery, DP : diaphragm  
Short ostial compression of the right renal artery by the right diaphragmatic crus. The right renal artery originates from the aorta above the SMA.

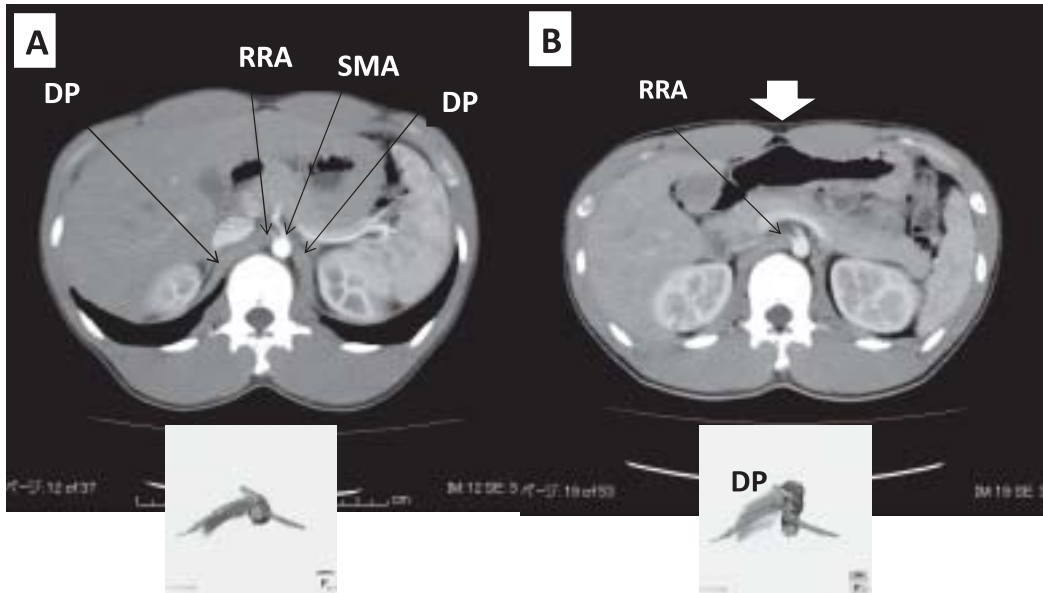


**Fig. 3. Selective angiography of the right renal artery**

Renal arteriography confirms a 50 % stenosis of the right renal artery. Venous samples were obtained in both renal veins. They did not demonstrate any hypersecretion of renin.

PRA : right renal vein : 4.8 ng/mL/hr, left renal vein : 5.2 ng/mL/hr.

In inspiration, blood pressure is pre-stenosis 148/86 mmHg, post-stenosis 128/77 mmHg (-20 mmHg).



**Fig. 4. Computed tomography in inspiration and expiration**

A : in inspiration, B : in expiration

In expiration, the right renal artery is more compressed laterally and posteriorly by the right diaphragmatic crus than in inspiration.

減少を起こす病態があり、腸管虚血を示す疾患の一つとして median arcuate ligament syndrome (MALS) と呼ばれている<sup>1)</sup>。同様の entrapment 症候群の一つとして、腎動脈が通

常より高位で大動脈から分岐すると、横隔膜脚の圧迫により内腔の狭窄化をきたし腎血管高血圧症が起こる例が過去に報告されており<sup>2~4)</sup>、稀に両側腎動脈の報告もある<sup>5)</sup>。ま

- 15 patients: mean age 65 (40-79) (6men 9women) (1995-2002)
- Investigated by: CT (n=14) and/or MRA (n=2)
- Symptoms: hypertension (n=7), chronic renal insufficiency (n=4), aneurysms (n=4)
- The right renal artery (n=11), the left renal artery (n=4)
- Compression: ostial (n=8), truncal (n=7)
- Stenosis  $\geq 50\%$  (n=8)
- Along the aorta on angiographic views (n=8), concentric ostial stenosis with no atheromatous lesions (n=7)
- Indicated for treatment (n=7): stenting (n=3), restenosis (stent fracture n=1)

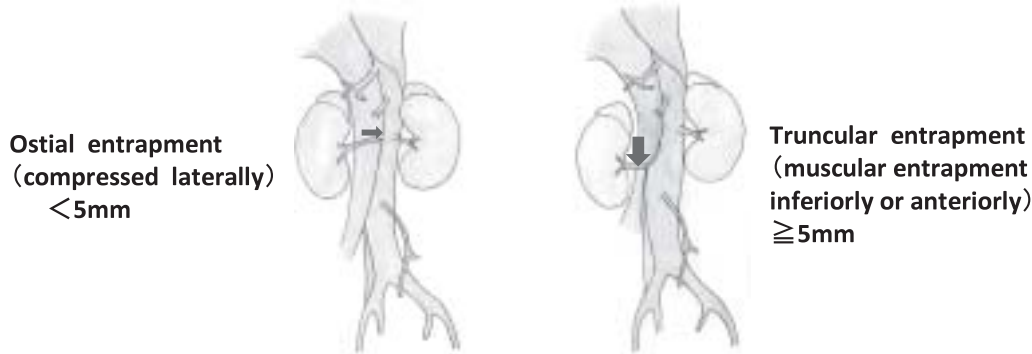


Fig. 5. Renal artery entrapment by the diaphragmatic crus (文献 7 より引用)

た、腎動脈本幹に狭窄がなくとも accessory renal artery が横隔膜脚による狭窄を受け、腎血管高血圧をきたすこともある<sup>6)</sup>。横隔膜による腎動脈狭窄の 3 大原因は、①先天性な横隔膜の異常、②腎動脈の高位分岐、③横隔膜脚の肥厚、といわれており<sup>7)</sup>、本症例ではこの後 2 者が該当する。

横隔膜脚による腎動脈圧迫の報告は少ないが、最も多い報告では 15 例を圧迫のタイプで 2 型に分類している<sup>7)</sup>。外側からの圧迫である腎動脈起始部圧迫型(圧迫部 < 5 mm)と前方下方への腎動脈本管圧迫型(圧迫の長さ  $\geq 5$  mm)である (Fig. 5)。本症例は起始部圧迫型と診断した。

横隔膜による腎動脈狭窄は呼吸性の変動を伴うことがあり、本症例では呼気に狭窄が悪化したが、呼気で狭窄が解除される症例もあり<sup>7)</sup>、呼吸によって圧迫される腎動脈と横隔膜との位置関係により個々の例で異なっている。

また、本症例では腹部症状はなかったが、腎動脈狭窄だけでなく、同時に腹腔動脈の狭窄 (5 例/15 例)、上腸間膜動脈の狭窄 (3 例/15 例) を伴うこともある<sup>7)</sup>。腹部症状を示す場合、腹腔動脈と上腸間膜動脈が横隔膜によって狭窄を受けていないかも、血管造影検査で体位を変えて同時に精査することが望ましい。

17 歳の患者で高血圧症のリスクファクターがなく、大動脈・腎動脈造影検査像より、大動脈縮窄症、粥状硬化症や線維筋性異形成、大動脈炎症候群を否定し、内分泌性高血

圧症を除外できるとすれば、本症例の高血圧に腎動脈狭窄の関与を疑う。しかし本症例では残念ながら血管造影中に狭窄側の腎静脈のレニン上昇を捉えられていない。

横隔膜による腎動脈の entrapment 症例を集めた文献では 15 例の患者中 7 例に不安定な高血圧を認めているが<sup>7)</sup>、狭窄があっても高血圧が起こるとは限らない。実験的には腎動脈血流の低下は腎動脈狭窄が 75 % 以上で起こり、70 % 以上の狭窄で収縮期血圧が上昇し始める<sup>8)</sup>。横隔膜の圧迫による腎動脈狭窄症ではレニン値が上昇しない症例も多く、今回のような 50 % 程度の狭窄の他の例では、左右腎静脈サンプルでレニン・アルドステロンの上昇はない<sup>7)</sup>。腹部超音波、CT、血管造影検査は臥位・立位の体位でしか撮影することはできないが、呼吸変動にかかわらず、より高度の狭窄を持続して起こすような姿勢 (例えば前屈姿勢) があるかもしれない。家庭血圧記録と入院中の測定記録によると、本症例の血圧の特徴は、短時間で変動する動揺性の高血圧とは異なり、数時間から日単位で 140~170 台/60~80 台 mmHg の高血圧を示すことが多く、しかし別の日には複数回測定しても 120 mmHg 台のこともあった。夏休み以降、受験のためにトレーニングを完全に休んだ間の血圧は正常血圧のときも多く、運動を休むことにより横隔膜が痩せて圧迫が解除されたかと考えたが、腹部超音波検査では横隔膜による腎動脈圧排は同じであった。

激しい無酸素運動(短距離走)の反復は、酸素需要が高まったときに狭窄側の腎が完全閉塞に近いような虚血状態を起こすことが予想される。レニンの分泌は、体位の変化、例えば臥位から立位になったときは 15 分程度で起こり 60~120 分でピークを迎えること<sup>9)</sup>、運動や低酸素状態でレニンの上昇は約 45 分でプラトーになること<sup>10)</sup>、レニンの半減期が 40~120 分であることを考えると、この患者の高血圧が運動後帰宅し就寝までも続き、安静時も続けて高い日があったのは、狭窄側の腎に早朝練習と放課後のトレーニングによって反復する運動負荷が加わり、間欠的腎動脈虚血と同じ状態になり、レニン・アルドステロン系を介し神経性調節のみならず、体液貯留を介する高血圧が起こったためと推測した。一方、体位の影響や運動負荷が少ないと、その後は正常血圧になるのかもしれない。

もし強い狭窄を起こす姿勢を把握できれば、その姿勢を 60 分間ほどとった後に低酸素(例: 16%O<sub>2</sub>)吸入下で負荷をかけて左右の腎静脈のレニンの差をみれば、より生体に近いレニンの上昇を捉えられたかもしれない。また、ACE 阻害薬や ARB を投与して投与前後の自由行動下血圧測定検査(ABPM)を実施し、ACE 阻害薬/ARB がそれ以外の降圧薬と比べて降圧効果に優れていれば、本症例の血圧上昇に腎動脈狭窄の関与が強いことを示唆することができるであろう。

なお尿蛋白については、一度だけ陽性で、早朝尿・安静時では陰性だったため、腎動脈狭窄によるものというよりは激しい運動により起こる蛋白尿の要素が強いと考えた。

横隔膜による腎動脈の狭窄に対する治療法は、血管内腔狭窄の治療法とは多少異なる。

- 1) 経皮経管的血管形成術: 腎動脈内部の狭窄ではなく外部からの圧迫であるため適応外である。
- 2) ステント留置術: 粥状硬化による狭窄であれば成功率は高いが、横隔膜による外部からの圧迫による場合、呼吸運動によるステントの破損の報告が多く、狭窄部位によっては慎重な意見が多い<sup>5,7,11)</sup>。
- 3) 大動脈-腎動脈バイパス術: 腎動脈に 60%以上の狭窄があり狭窄が今後も進行するリスクが高い場合は適応である。根治術だが侵襲が大きく、手術による背筋や腸腰筋の萎縮は今後の競技成績に影響すると思われた。
- 4) 圧迫横隔膜の除去・部分切断: 侵襲が大きく運動機能低下の可能性が高い。
- 5) 横隔膜に対するボツリヌス毒の注入術<sup>12)</sup>: 一施設の報告のみで、技術的に困難であるだけでなく、術後の運

動能力の低下が予想される。

患者の成長に伴う体型の変化により狭窄の程度が変化するのであること、スポーツを継続することで横隔膜がさらに発達する可能性もあること、横隔膜そのものを外科的に治療する根治治療や侵襲の大きな手術は、瞬発力を必要とする短距離走競技者である本症例の競技能力を低下させる恐れがあること、また、高血圧も常時ではなかったため、非侵襲的な超音波ドプラ法で半年ごとに狭窄度と腎の大きさを経時的に観察し、高血圧症が継続すれば ACE 阻害薬/ARB などの薬物的降圧療法を考慮し、右側腎臓の大きさが少しでも小さくなりかければ侵襲的治療を検討することにした。

陸上競技の継続については、スポーツ医学専門外来を受診、心肺運動負荷試験を施行、運動耐容量・最大運動下での血圧を測定し、無酸素運動閾値以上でも血圧の上昇が著明でなく、運動時の血圧は問題ないと結論が出たため許可した。競技選手の場合ドーピング違反とならない薬物の選択、治療目的使用にかかわる除外措置(therapeutic use exemptions: TUE)を申請することによって薬物使用継続が可能である。本症例は今春体育大学への進学が決まったため、校医と大学近くの循環器科医師に経過観察を依頼した。

## 結 語

発達した右横隔膜脚が右腎動脈の起始部を圧排したために高血圧をきたしたと思われた 17 歳高校生の症例を経験した。腎血管性高血圧のなかには、粥状硬化症や線維筋性異形成症以外に、腎動脈が外部から圧迫・絞扼されて起こる稀な症例がある。外部からの横隔膜による腎動脈圧迫が疑われる場合、血管造影の撮影方向や呼吸性運動による変化も考慮して診断を行い、腹腔動脈と上腸間膜動脈の狭窄にも注意を払い、慎重な治療法の選択が望まれる。

利益相反: 申告すべきものなし

## 文 献

1. Stanley JC, Fry W. Median arcuate ligament syndrome. Arch Surg 1971; 103: 252-258.
2. D'Abrieu F, Strickland B. Developmental renal artery stenosis. Lancet 1962; 2: 517-521.
3. Spies JB, LeQuire MH, Robinson JG et al. Renovascular hypertension caused by compression of the renal artery by the diaphragmatic crus. AJR 1987; 149: 1195-1196.
4. Dure-Smith P, Bloch RD, Fymat AL, et al. Renal artery entrap-

- ment by the diaphragmatic crus revealed by helical CT angiography. *AJR* 1998 ; 170 : 1291-1292.
5. Déglise S, Corpataux JM, Haller C, et al. Bilateral renal artery entrapment by diaphragmatic crura : a rare cause of renovascular hypertension with a specific management. *J Comput Assist Tomogr* 2007 ; 31 : 481-484.
  6. Ozmen CA, Hazirolan T, Canyigit M, et al. An unusual reason for renovascular hypertension : entrapment of an accessory renal artery by the diaphragmatic crus. *J Vasc Intervent Radiol* 2006 ; 17 : 1713-1714.
  7. Thony F, Baguet JP, Rodiere M, et al. Renal artery entrapment by the diaphragmatic crus. *Eur Radiol* 2005 ; 15 : 1841-1849.
  8. Imanishi M, Akabane S, Takamiya M, et al. Critical degree of renal arterial stenosis that causes hypertension in dogs. *Angiology* 1992 ; 43 : 833-842.
  9. Cohen EL, Conn JW, Rovner DR. Postural augmentation of plasma renin activity and aldosterone excretion in normal people. *J Clin Invest* 1967 ; 46 : 418-428.
  10. Milledge JS, Catley DM. Renin, aldosterone, and converting enzyme during exercise and acute hypoxia in humans. *J Appl Physiol* 1982 ; 52 : 320-323.
  11. Baguet JP, Thony F, Sessa C, et al. Stenting of a renal artery compressed by the diaphragm. *J Hum Hypert* 2003 ; 17 : 213-214.
  12. Bilici A, Karcaaltincaba M, Llica AT, et al. Treatment of hypertension from renal artery entrapment by percutaneous CT-guided botulinum toxin injection into diaphragmatic crus as alternative to surgery and stenting. *AJR* 2007 ; 189 : W143-W145.