

高安動脈炎による鎖骨下動脈盗血症候群のため血液透析導入に苦慮した症例

橋本安紀子*¹ 岩津好隆*¹ 安藤康宏*¹ 井上 真*¹
斎藤 修*¹ 朝倉伸司*² 武藤重明*¹ 八木澤 隆*¹
草野英二*¹

Difficult hemodialysis induction due to subclavian steal syndrome in a patient with Takayasu's arteritis

Akiko HASHIMOTO*¹, Yoshitaka IWAZU*¹, Yasuhiro ANDO*¹, Makoto INOUE*¹, Osamu SAITO*¹,
Shinji ASAKURA*², Shigeaki MUTO*¹, Takashi YAGISAWA*¹, and Eiji KUSANO*¹

*¹Nephrology Center, Jichi Medical University, *²Oyama Suginoki Clinic, Tochigi, Japan

要 旨

症例は高安動脈炎による両側腎動脈狭窄のため末期腎不全に至った53歳、女性。2002年、意識消失発作を起こした際に、左鎖骨下動脈盗血症候群(SSS)を指摘された。2004年6月慢性腎不全が進行し、腎代替療法検討のため入院となった。内シャント作製によるSSSの悪化が報告されているため、腹膜透析導入を強く勧めたが、本人の強い希望があり血液透析導入を選択した。脳血流SPECTで脳血流低下のないことを確認し、magnetic resonance angiographyなどで血行動態を検討後、左前腕に内シャントを造設した。血液透析導入後に脳血流シンチグラフィを施行し、シャント造設前と比較し脳血流に変化は認められなかったため、維持血液透析へ移行した。血液透析開始2年後の脳血流シンチグラフィでも脳血流の低下なく、血液透析導入後一度もSSSの症状を認めていない。内シャント造設後にSSSを発症した症例は報告されているが、SSSを認める症例に内シャントを造設した報告は認めない。高安動脈炎の症例では、鎖骨下動脈盗血現象を含めた血行動態と脳血流の評価が内シャント造設前に必要と考えられる。

The patient was a 53-year-old woman who had bilateral renal arterial constriction due to Takayasu's arteritis, and developed end-stage renal failure. When transient loss of consciousness occurred in 2002, she was diagnosed with subclavian steal syndrome (SSS). The renal failure worsened in June 2004, and there was concern that the left SSS could become aggravated as a consequence of creating an arterio-venous (AV) shunt. Although peritoneal dialysis was strongly recommended, she elected to undergo hemodialysis. We confirmed that there was no reduction of cerebral blood flow using brain single photon emission computed tomography (SPECT). Right and left examinations indicated the site at which an AV shunt should be created and subsequently, the AV shunt was created on the left fore-arm. Brain SPECT findings were again confirmed after dialysis, at the time of hemodialysis induction, and again 2 years after hemodialysis induction, showing no reduction in cerebral blood flow. She has no apparent symptoms or signs of left SSS, to date. Although it is known that an SSS could arise after AV shunt creation, there has been no report of the creation of an AV shunt in a case of SSS. The present case suggests that cerebral blood flow measurement using brain SPECT is useful for evaluating cerebral hemodynamics before AV fistula creation among patients with Takayasu's arteritis.

Jpn J Nephrol 2011 ; 53 : 1034-1040.

Key words : Takayasu's arteritis, end stage renal failure, subclavian steal syndrome, hemodialysis, arteriovenous fistula

緒 言

鎖骨下動脈盗血症候群(subclavian steal syndrome)は、鎖骨下動脈起始部の狭窄・閉塞により患側上肢の血流が同側椎骨動脈を逆流し供給されるため発症する。患側上肢の運動などにより同側上肢のしびれ、疼痛以外に、めまい、視力異常や失神などの神経症状が出現する。症状を認めない場合を鎖骨下動脈盗血現象という。近年、維持血液透析患者で、内シャント造設により鎖骨下動脈盗血症候群を合併する症例^{1~5)}が散見される。しかし、鎖骨下動脈盗血症候群を認める症例に内シャントを造設した報告は認めない。

われわれは、高安動脈炎による両側腎動脈狭窄のため慢性腎不全をきたし血液透析導入となった症例を経験した。本症例は左鎖骨下動脈盗血症候群により意識消失発作をきたした既往があり、内シャント造設によって同症候群増悪の恐れがあったが、左上肢に内シャントを造設した。その際、内シャント造設・血液透析導入前後で頸部血管超音波検査および脳血流シンチグラフィを用いて血行動態を評価

したので、若干の考察を加え報告する。

症 例

患 者：53 歳，女性

主 訴：易疲労感

既往歴：25 歳；髄膜炎

家族歴：父；心不全，母；腎不全，姉；心不全，脳梗塞

現病歴：1972 年(22 歳時)1 月，近医にて血管造影検査を施行，左総頸動脈狭窄，左鎖骨下動脈閉塞，右鎖骨下動脈狭窄や右腎動脈の壁不整を認め高安動脈炎と診断された。1991 年 2 月，腎機能障害(クレアチニンクリアランス 46.7 mL/min/1.73 m²)を指摘され，精査目的に当院に入院となった。右腎は萎縮しており(Fig. 1a, b)，レノグラム上無機能腎であった(Fig. 1c)。左腎は皮質が保たれている部位と萎縮している部位が混在していたが，レノグラム上正常であった(Fig. 1c)。腹部 computed tomography (Fig. 1a) や magnetic resonance (MR) angiography (Fig. 1b) 上，左右腎動

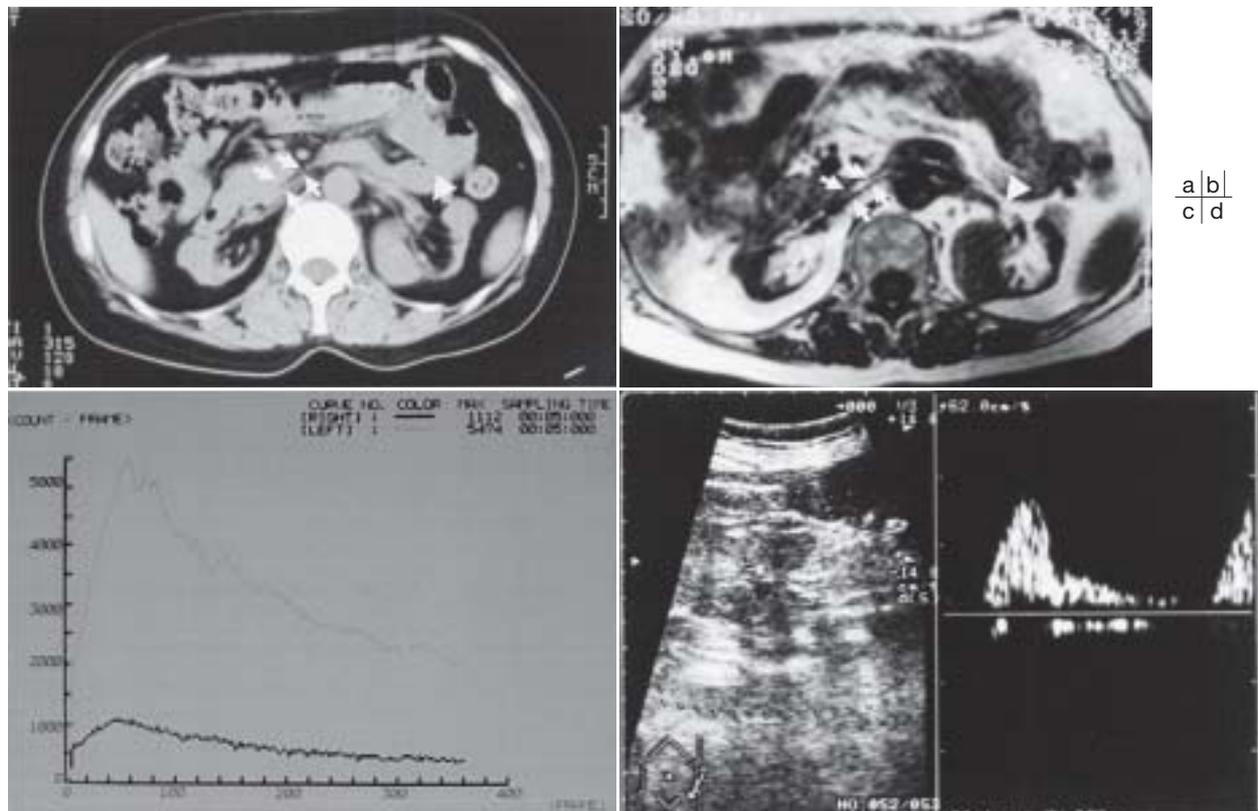


Fig. 1.

- a, b : Abdominal computed tomography and magnetic resonance reveal a reduced size of the right kidney. Stenotic lesion of the bilateral renal arteries are indicated between the arrowheads.
- c : Renogram shows an almost nonfunctioning pattern of the right kidney.
- d : Duplex-Doppler ultrasound examination of the left renal artery reveals prolongation of acceleration time.

脈の狭窄が疑われる所見を認め、腹部ドプラ超音波検査 (Fig. 1d) 上、左腎の葉間動脈血流波形において収縮期の開始からピークまでの時間 (acceleration time) の延長が認められたことより、腎不全の原因は高安動脈炎による両側腎動脈狭窄と考えられた。2002 年 1 月、30 秒ほどの意識消失発作を認め、頸部血管超音波検査にて左鎖骨下動脈に収縮期に逆流があり、鎖骨下動脈盗血症候群と診断された。その後、徐々に腎不全が進行し、2004 年 6 月、透析療法導入

目的で当院に入院となった。

入院時現症：意識清明，身長 147.3 cm，体重 43.6 kg，血圧：右 202/94 mmHg，左 132/70 mmHg，脈拍 88/分・整，体温 38.0°C，両頸部に血管雑音を聴取，胸骨右縁第 2 肋間に LevineIV/VI の収縮期雑音を聴取，呼吸音に異常なし，腹部は平坦・軟で圧痛なし，血管雑音を聴取，下腿浮腫なし，四肢動脈は左足背のみ触知できず。

入院時検査所見：WBC 9,100/ μ L，RBC $247 \times 10^4/\mu$ L，

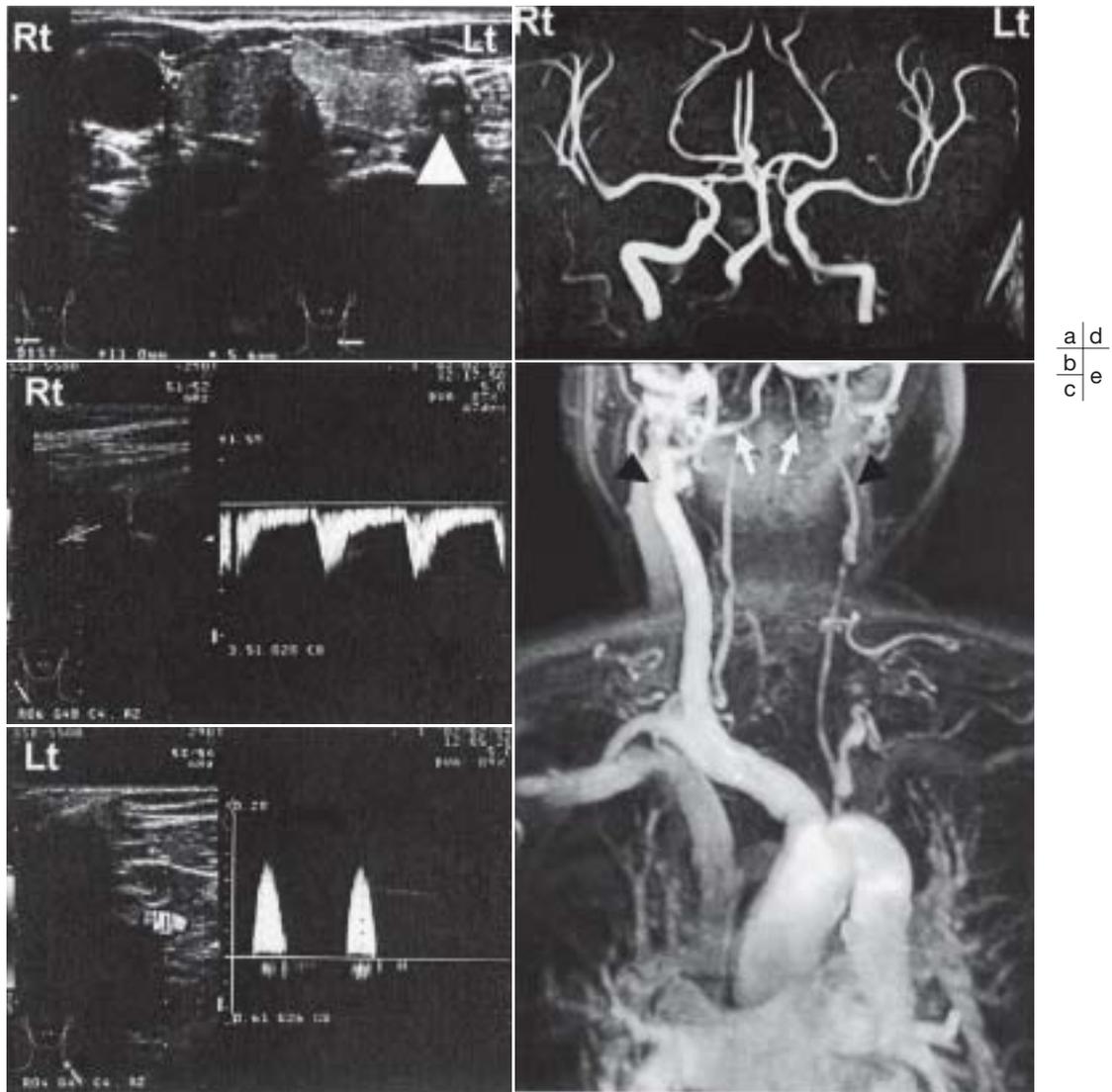


Fig. 2.

- a : Echo-color Doppler shows homogeneous, circumferential wall thickening of the left common carotid artery (“macaroni sign”) with luminal stenosis (white arrowhead).
 b, c : Doppler flow imaging showed partial reversal of flow of the left vertebral artery (c), and a normal flow pattern of the right vertebral artery (b).
 d, e : Magnetic resonance (MR) angiography showing complete obstruction of the left subclavian artery, severe stenosis of the left carotid artery (black arrowheads), and no stenosis of the intra-cranial cerebral arteries.

Arrow (white) : vertebral arteries, arrowheads (black) : carotid arteries, Rt : right, Lt : left

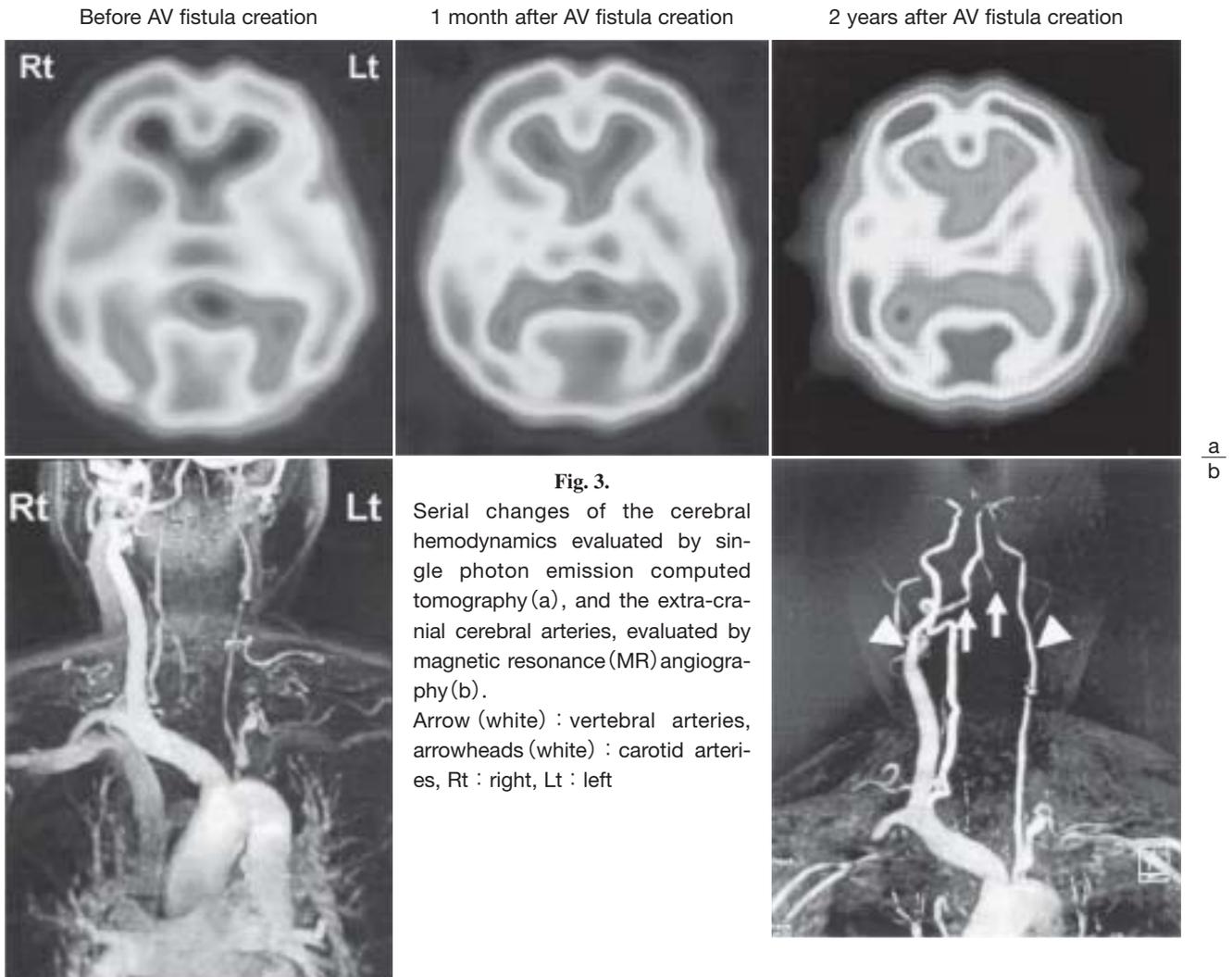


Fig. 3.

Serial changes of the cerebral hemodynamics evaluated by single photon emission computed tomography (a), and the extra-cranial cerebral arteries, evaluated by magnetic resonance (MR) angiography (b).

Arrow (white) : vertebral arteries, arrowheads (white) : carotid arteries, Rt : right, Lt : left

Hb 7.5 g/dL, Ht 23.0 %, Plt $15.8 \times 10^4 / \mu\text{L}$, PT 10.0 sec, APTT 20.3 sec, TP 5.9 g/dL, Alb 3.3 g/dL, BUN 83 mg/dL, Cr 8.04 mg/dL, UA 5.6 mg/dL, Na 139 mEq/L, K 5.0 mEq/L, Cl 108 mEq/L, Ca 7.9 mg/dL, P 4.1 mg/dL, CRP 1.8 mg/dL, 尿蛋白 3+ (2.6 g/日), 尿潜血+, 尿沈査; 赤血球 8~9/HPF, 顆粒円柱 6~7/全視野, クレアチニクリアランス $4.7 \text{ mL/min/1.73 m}^2$

頸部超音波検査所見: 総頸動脈に左右差を認め(右 11 mm, 左 6 mm), 左頸動脈ではマカロニサインを認めた (Fig. 2a)。椎骨動脈の血流は右が順行性で正常パターン, 左が逆行性パターンであり, 左鎖骨下動脈盗血現象を認めた (Fig. 2b)。

大動脈弓から頭部 MR angiography (Fig. 2b): 左総頸動脈は著明に狭窄化しており, 左鎖骨下動脈は起始部で完全に閉塞していた。左椎骨動脈で有意な狭窄を認めるが, 右椎骨動脈は保たれていた。

脳血流シンチグラフィ (Fig. 3a): 脳血流低下は認めなかった。

臨床経過: 高安動脈炎により Fig. 4 のように多くの動脈に狭窄部位や閉塞部位を認め, 血行動態が複雑であるため血液透析よりも腹膜透析が適応と考え, 本人および家族と何度も話し合いを重ねた。しかし, 腹膜透析を本人が頑なに拒否し, 血液透析を導入する方針となった。内シャント造設にあたり, 脳血流, 頭頸部の血行動態を確認し, 内シャント造設部位について検討をした (Fig. 5)。

1) 左上肢に内シャント造設した場合

左上肢の血流量が増加することが考えられ, 過去の報告でも同側の椎骨動脈に逆流が生じる場合が多く^{1~4)}, 血液透析を長期に行った場合, さらに左鎖骨下動脈盗血症候群が悪化することが懸念された。

2) 右上肢にシャント造設した場合

右内頸動脈が本症例では左側と比べて有意に拡大してお

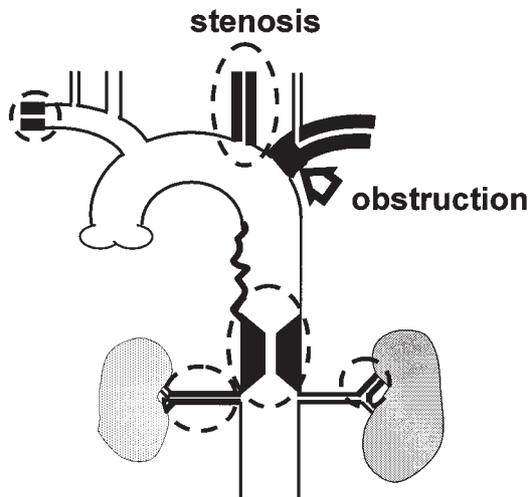


Fig. 4. Schematic illustration of the anatomical constitution

り、脳血流全体が右頸動脈に依存している可能性が高いと考えられた。血液透析開始により血流が右上肢に集中するため、血液透析中右頸動脈血流が減少し、脳血流低下につながる可能性が想定された。

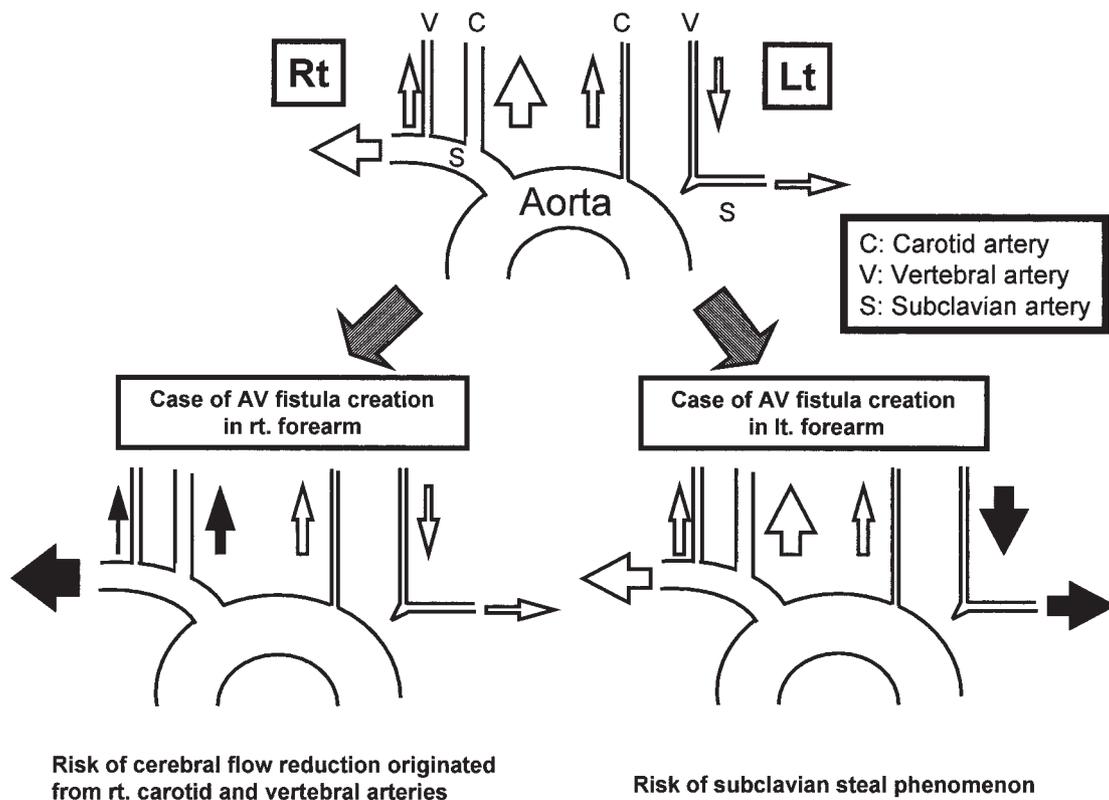
以上を含め、内科と外科で十分に検討した結果、より影

響が少ないと考えられる左上肢に内シャントを造設した。また、造設部位については、血管が細く血流の影響がより少ない上肢末梢を選択し、左手首部に内シャント造設する方針となった。通常より血管切開径を小さめにし、右橈骨動脈と皮静脈を端側吻合し、内シャントを造設した。

左上肢内シャント造設 8 日後、肺炎を契機にうっ血性心不全(CTR 76%)を発症したため血液透析を導入した。除水にてうっ血性心不全は改善した(CTR 52%)。内シャント造設後 1 カ月目の透析後に脳血流シンチグラフィを施行したが、内シャント造設前と比較して増悪は認められなかった。脳血流障害や鎖骨下盗血症候群による自覚症状を認めないことを確認し退院とした。血液透析導入 2 年後に頸動脈超音波検査、MR angiography や脳血流シンチグラフィを施行したが、血液透析前と比較し有意な変化を認めなかった(Fig. 2)。2010 年 12 月現在、透析を含めた経過は良好である。

考 察

高安動脈炎(高安病、大動脈炎症候群)は、大動脈および



Risk of cerebral flow reduction originated from rt. carotid and vertebral arteries

Risk of subclavian steal phenomenon

Fig. 5. Schematic illustration showing altered cerebral hemodynamics affected by the portion of arteriovenous fistula creation

その主要分枝や冠動脈、肺動脈に閉塞性あるいは拡張性病変をきたす原因不明の非特異的大型血管炎である。わが国では若い女性に好発し、狭窄部位または血栓形成による虚血が引き起こす非特異的な症候が中心である^{6,7)}。罹患部位は、左鎖骨下動脈(85%)、下行大動脈(67%)、総頸動脈(44%)、上行から弓部大動脈(27%)、腸骨動脈(16%)、大腿動脈(3%)であり⁸⁾、腎動脈病変の頻度は47~62%と報告されている^{8,9)}。わが国および南米では頸動脈や上行大動脈病変が特徴的である一方、イスラエルをはじめとするアジア諸国では、腹部大動脈を主とした病変による腎血管性高血圧が多く、地域差が存在する^{6,7)}。その地域差を反映して主要な死因も、わが国では上行大動脈拡張のため生じる大動脈弁閉鎖不全症によるうっ血性心不全や不整脈であるが、アジア諸国では腎血管性高血圧による脳血管イベントである⁷⁾。

1. 高安動脈炎と腎不全(腎障害)

わが国の高安動脈炎 1,213 例中、尿蛋白の頻度は 13.2% (160 例)、腎不全の頻度は 11.1% (135 例)であり、透析患者の割合は 0.8% (10 例)と報告されている¹⁰⁾。この透析患者 10 例のうち、7 例で腎血管性高血圧を認め、腎不全の進展には本疾患が深く関与していると考えられている¹⁰⁾。本症例も両側腎動脈狭窄を認めており、腎血管性高血圧が腎不全の原因と考えられる。しかし、本症例では顕微鏡的血尿や顆粒円柱を認めており、高安動脈炎には IgA 腎症を含めた糸球体腎炎合併の報告もあり¹¹⁾、糸球体腎炎合併の可能性も否定はできない。

2. 高安動脈炎と鎖骨下動脈盗血現象

鎖骨下動脈盗血現象とは、鎖骨下動脈起始部狭窄または閉塞があり、同側の椎骨動脈が逆流することであり、高安動脈炎では、ほとんどの症例で鎖骨下動脈が椎骨動脈分岐部の遠位側および近位側ともに狭窄または閉塞しているため、鎖骨下動脈盗血現象は起こしにくいと考えられている¹²⁾。本症例は、左鎖骨下動脈起始部はほぼ完全に閉塞しているが(つまり椎骨動脈分岐部の近位側が閉塞)、上腕動脈側への血流を認めた。したがって、右椎骨動脈より左椎骨動脈を逆流し、上腕動脈に血流を供給していると考えられる(Fig. 3)。本症例は、2002 年に意識消失を生じているが、上肢の激しい運動など鎖骨下動脈盗血症候群を引き起こす要因を避けることで、その後はめまいを含めた椎骨・脳底動脈系の神経症状は認めていない。

3. 血液透析(内シャント)と鎖骨下動脈盗血現象

倉重らは、鎖骨下動脈盗血症候群を疑わせる症状のない維持血液透析患者 190 例に頸部超音波検査を行い、12 例

(6.3%)に鎖骨下動脈盗血現象を認め、すべて内シャント側に生じていたと報告した¹³⁾。これは、非透析患者の鎖骨下動脈盗血現象の頻度が 1~4%と報告されていること^{14,15)}と比較すると、血液透析患者では鎖骨下動脈盗血現象の頻度が高い可能性を示唆しており、内シャント圧迫により血流が変化することから^{2,3,13)}も、内シャント造設が鎖骨下動脈盗血現象を引き起こしていると考えられる。この原因として、シャント血流により上肢血流が増大することや、血液透析患者では鎖骨下動脈などの動脈硬化が進展しやすいことがあげられている。つまり、内シャント作製前にすでに鎖骨下動脈盗血現象が存在した場合、シャントによる末梢血管抵抗の減少により盗血現象が増強し、鎖骨下動脈盗血症候群を発症する可能性を示唆している。しかし、本症例は内シャント作製により鎖骨下動脈盗血症候群の増悪を認めなかった。原因として、高安動脈炎のため左鎖骨下動脈が閉塞しているが、その末梢の血流を維持するために椎骨動脈以外に側副血行路が発達していると考えられ、内シャント造設により左椎骨動脈の逆流の程度はドプラ超音波検査上変化を認めなかったことから、側副血行路がさらに発達したと考えられる。

4. 高安動脈炎と脳血流

高安動脈炎の脳血流評価には脳血流シンチグラフィが有用であり^{16,17)}、本症例のように、頸動脈に狭窄病変を認めた場合においても側副血行路の発達を認め、脳血流は保たれることが多いと報告されている^{16,18)}。しかし、高安動脈炎で脳血流低下による症状を認めない場合でも、脳血流が潜在的に低下している症例¹⁹⁾や体位変換などの負荷時に脳血流が低下する症例²⁰⁾も報告されている。そのため、血液透析導入後を含め脳血流低下を示唆する症状は認めなかったが、内シャント作製前と内シャント作製・血液透析導入後に脳血流シンチグラフィを施行し脳血流を評価した。その結果、脳血流低下を認めず、内シャント作製や血液透析導入は本症例の脳循環に影響を与えなかったと考えられる。

結 語

本症例のように、高安動脈炎の症例に血液透析を導入することや、鎖骨下動脈盗血症候群のある症例に内シャントを造設することはきわめて稀である。内シャント造設前に頸動脈超音波検査や MR angiography で狭窄部位や血行動態を、脳血流シンチグラフィにて脳血流を評価することにより、内シャント造設後の鎖骨下動脈盗血症候群の増悪や

脳血流の低下を認めなかった。高安動脈炎の症例では、鎖骨下動脈盗血現象を含めた血行動態の評価と脳血流の評価が内シャント造設前に必要と考えられる。

利益相反自己申告：申告すべきものなし

文 献

1. Schenk WG III. Subclavian steal syndrome from high-output brachiocephalic arteriovenous fistula: a previously undescribed complication of dialysis access. *J Vasc Surg* 2001; 33: 883-885.
2. 坂下泰雄, 古井英介, 佐藤重彦, 絹谷啓子, 山田正仁. 動静脈シャントにより鎖骨下盗血現象をきたした透析患者の一例. *Neurosonology* 2002; 15: 76-79.
3. 尾前 豪, 平井優子, 藤井健一郎, 池田 潔, 井林雪郎, 飯田三雄. 血液透析導入のシャント造設にて誘発された鎖骨下盗血現象の1例. *日内会誌* 2005; 94: 129-131.
4. 藤本憲太, 飯田淳一, 川口正一郎, 榊 寿右, 椎木英夫, 斉藤能彦. 透析用シャント造設後, subclavian steal phenomenon を呈した1例. *脳と神経* 2004; 56: 599-602.
5. 熊谷文昭, 榊田隆久, 佐々木路佳, 近藤正道, 由良茂貴, 石崎賢一, 坂本和也. 高流量化した標準内シャントによって鎖骨下動脈スチール症候群を発症した1例. *日透析医学雑誌* 2009; 42: 529-534.
6. Numano F, Kobayashi Y. Takayasu arteritis-beyond pulselessness. *Intern Med* 1999; 38: 226-232.
7. Numano F, Okawara M, Inomata H, Kobayashi Y. Takayasu's arteritis. *Lancet* 2000; 356: 1023-1025.
8. Lupi-Herrera E, Sanchez-Torres G, Marcushamer J, Mispireta J, Horwitz S, Vela JE. Takayasu's arteritis: clinical study of 107 cases. *Am Heart J* 1977; 93: 94-103.
9. Yamato M, Lecky JW, Hiramatsu K, Kohda E. Takayasu arteritis: radiographic and angiographic findings in 59 patients. *Radiology* 1986; 161: 329-334.
10. Koide K. Takayasu arteritis in Japan. *Heart Vessels* 1992; 7 (Suppl): 48-54.
11. 根本 遵, 江幡 理, 安藤康宏, 草野英二, 浅野 泰. 大動脈炎症候群に合併したメサングウム増殖性糸球体腎炎 (IgA 腎症) の1例. *腎と透析* 1994; 37: 615-620.
12. Renzo MD, Pasqui AL, Pieragalli D, Franco VD, Bracco S, Venturi C, Bruni F, Puccetti L, Verzuri MS, Auteri A. Takayasu's arteritis: case report of a patient with recurrent subclavian steal syndrome. *Heart Vessels* 2004; 19: 94-97.
13. 倉重康彦, 大久保洋平, 平田経雄, 吉戒理香, 大坪義彦, 古賀伸彦. 維持透析内シャントにより増強された鎖骨下動脈盗血現象. *超音波検技* 2007; 32: 17-21.
14. 榊田晃子, 本田玲子, 辻村久美子, 金子厚子, 千葉優子, 東谷保子, 木村寛子. 椎骨動脈パルスドプラー検査の有用性—鎖骨下動脈盗血現象症例を中心に—. *超音波検技* 2004; 29: 39-44.
15. Kliever MA, Hertzberg BS, Kim DH, Bowie JD, Courneya DL, Carroll BA. Vertebral artery Doppler waveform change indicating subclavian steal physiology. *AJR Am J Roentgenol* 2000; 174: 815-819.
16. Takano K, Sadoshima S, Ibayashi S, Ichiya Y, Fujishima M. Altered cerebral hemodynamics and metabolism in Takayasu's arteritis with neurological deficits. *Stroke* 1993; 24: 1501-1506.
17. Stoodley MA, Thompson RC, Mitchell RS, Marks MP, Steinberg GK. Neurosurgical and neuroendovascular management of Takayasu's arteritis. *Neurosurgery* 2000; 46: 841-852.
18. Sano K, Aiba T, Saito I. Angiography in pulseless disease. *Radiology* 1970; 94: 69-74.
19. 加藤賢一, 片山雅夫, 吉田俊治, 大島久二, 鳥飼勝隆. 脳血流 SPECT でびまん性脳血流低下を認めた高安動脈炎の1例. *中部リウマチ* 2001; 32: 129-130.
20. Kume N, Hayashida K, Cho IH, Shimotsu Y, Nishioeda Y, Matsunaga N. Visualization of frontal postural hypoperfusion in patients with Takayasu arteritis with upright ⁹⁹Tc^m-HMPAO brain SPET. *Nuclear Med Comm* 1997; 18: 943-950.