

動静脈瘻を伴う腸骨動脈瘤に起因した急性腎障害の1例

山崎 賢士^{*1,2} 榎間 昌哲^{*1} 長倉 優花^{*1} 橋本 紘幸^{*1}
田代 傑^{*1} 三輪 真史^{*1} 米村 克彦^{*1}

Left common iliac artery aneurysms with arteriovenous fistula that caused acute kidney injury

Kenji YAMAZAKI^{*1,2}, Masanori SAKAKIMA^{*1}, Yuka NAGAKURA^{*1}, Hiroyuki HASHIMOTO^{*1},
Takeshi TASHIRO^{*1}, Masashi MIWA^{*1}, and Katsuhiko YONEMURA^{*1}

^{*1}Department of Internal Medicine, Fujinomiya City General Hospital, Shizuoka,

^{*2}Department of Epidemiology, Graduate School of Medicine, Dentistry and Pharmaceutical Sciences,
Okayama University, Okayama, Japan

要 旨

77歳、男性。入院2カ月前から左下肢の浮腫を自覚し始めた。血液検査でCr 2.54 mg/dL(2カ月前はCr 0.9 mg/dL)と急性腎障害を認め、緊急入院となった。入院時、単純CTで腹部大動脈瘤と左総腸骨動脈瘤、下肢静脈超音波検査で左大腿静脈の深部静脈血栓症が確認された。加えて、高ナトリウム血症(Na 152.0 mEq/L)、尿中Na排泄率低下[fractional excretion of sodium(FENa)0.09%]を認めた。主要症状、血液・尿検査より循環血液量減少に伴う急性腎前性腎障害と診断して、輸液を開始した。輸液だけでは腎機能は部分的な治療効果しか得られず(Cr 1.54 mg/dL)、経過中のFENaは一向に上昇しなかった。第15病日から高拍出性心不全を合併したため、利尿薬と強心薬を併用した。数日かけて腎機能は改善をみたため(Cr 1.28 mg/dL)、第25病日に肺塞栓症や腎動脈狭窄症の除外目的に造影CTを施行した。下大静脈が動脈相で早期濃染され、総腸骨動脈瘤と総腸骨静脈に交通を認め、左総腸骨動脈静脈瘻と診断が確定し、同日、他院心臓血管外科へ緊急転院搬送とし、緊急手術となった。腹部大動脈瘤・総腸骨動脈瘤・総腸骨静脈瘻に対して腹部大動脈人工血管置換術を施行した。手術後、数日で心不全、腎障害は改善した(Cr 0.85 mg/dL)。

本症例は骨盤腔内の腸骨動脈瘤に合併した動静脈瘻による急性腎障害であり、連続性雑音や振動音などの身体所見に乏しく、診断に難渋した稀有な症例であるため報告した。急性腎障害の経過において、輸液への反応性に乏しく、FENaの上昇をみない腎前性急性腎障害をみた場合には、鑑別として動静脈瘻をあげることが重要と考える。

A 77-year-old Japanese man had noticed a left lower extremity edema more than 2 months before admission. He was urgently admitted to our hospital for acute kidney injury[serum creatinine(Cr)2.54 mg/dL,(0.9 mg/dL 2 months previously)]. Additionally, systematic plain computed tomography(CT)showed aneurysm of the abdominal aorta and left common iliac artery aneurysms, and Duplex ultrasound evaluation of the lower extremities revealed deep-vein thrombosis. He had a clinical history consistent with fluid loss, a physical examination consistent with hypovolemia(hypotension and tachycardia), and laboratory tests showing hyponatremia Na 152.0 mEq/L and low fractional excretion of sodium(FENa)at 0.09 %, hence we diagnosed prerenal acute kidney injury, and administered intravenous fluid therapy. This therapy was only partially efficient(Cr 1.54 mg/dL), and in his clini-

cal course, FE_{Na} remained low. Thereafter, he was complicated by high-output heart failure from the 15th day, and we added diuretic and dobutamine to his treatment. On the 25th day, he recovered further from renal failure (Cr 1.28 mg/dL). Contrast enhanced CT showed early-phase enhancement of the inferior vena cava, and left common iliac arteriovenous aneurysms with a shunt blood flow from the left common iliac artery to vein, hence we diagnosed a left common iliac arteriovenous fistula. He was admitted immediately to another hospital and underwent an emergency operation, during which the aneurysms were replaced with a prosthetic graft. His renal failure improved rapidly within a few days after the operation (Cr 0.85 mg/dL).

This was a case of acute kidney injury due to a left common iliac arteriovenous fistula without typical physical findings (continuous bruit, thrill). This case suggests the need to repeat careful observation of the response to fluid repletion and FE_{Na} during the clinical course of acute kidney injury. If fluid repletion therapy does more harm than good, it might be necessary to make a differential diagnosis of arteriovenous fistula.

Jpn J Nephrol 2017 ; 59 : 1252-1257.

Key words : acute kidney injury, arterial aneurysm, arteriovenous fistula, deep-vein thrombosis, high-output heart failure

緒 言

腎前性腎障害とは、腎血流量の減少による急性腎障害の総称である。腎血流量の減少には、1)総循環血液量が減少するために生じる病態と、2)“有効”循環血液量の減少、つまり総循環血液量が減少しないが腎血流量が減少する病態、に分類される。総循環血液量の減少は、下痢や嘔吐などによる腎外性喪失と利尿薬や高血糖時の浸透圧利尿などによる腎性の喪失とがあるが、それらは症状や所見が明らかでないため診断は比較的容易である。一方、“有効”循環血液量減少の鑑別疾患は多岐にわたり、陽圧換気、心機能低下、3rdスペースへの水の移動、副腎不全、全身血管抵抗の低下、過粘稠症候群、腎循環不全、コレステロール塞栓などがあげられている¹⁾。“有効”循環血液量の減少による腎前性腎障害の稀な原因として動静脈瘻があり、それは高拍出性心不全を合併して、さらに病態を複雑にしうる。そのため、診断に難渋し診断まで数年かかった症例もある²⁾。今回われわれは、腸骨動静脈瘻に起因した急性腎障害の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 77 歳, 男性

主 訴 : 食欲不振, 下腿浮腫

現病歴 : X-10 年に脳出血(後遺症はほとんどない)を起こした際に高血圧を指摘され、以降近医に定期通院していた。X年5月より左下肢の浮腫を自覚。6月には歩行困難となり、7月より食欲低下もきたしたため当科を受診した。血液検査で Cr 2.54 mg/dL (X年5月: Cr 0.9 mg/dL) と急性

腎障害を認め、精査加療目的に入院となった。

生活歴 : 喫煙歴なし, 飲酒歴なし

既往歴 : 脳出血, 脳梗塞, 前立腺肥大症, 高血圧

内服歴 : シロスタゾール 20 mg/日, イミダフェナシン 0.1 mg/日, ロサルタン 100 mg/日, アムロジピン 5 mg/日, アトルバスタチン 5 mg/日

入院時現症 : 身長 172 cm, 体重 68 kg (3 カ月間で体重変化なし)。体温 36.1 °C, 血圧 112/63 mmHg, 脈拍 109 /分, SpO_2 97 % (room air)。身体所見では左下腿の圧痕性浮腫以外には明らかな異常所見なし

血液検査 (Table) : 血算には異常なく, 凝固は D-dimer 7.21 μ g/mL と軽度高値, 生化学では高尿酸血症 (尿酸 15.6 mg/dL) と腎障害 (Cr 2.54 mg/dL), 高ナトリウム血症 (Na 152.0 mEq/L) を認めた。血尿や蛋白尿はなし。尿中 Na 排泄率 [fractional excretion of sodium (FE_{Na}) 0.09 %] は低下

心電図 : 洞調律, 正常軸, 洞性頻脈

胸部 X 線検査 : 肺野の透過性低下なし, 心拡大なし

心臓超音波検査 : ejection fraction : 64%, 下大静脈径 24mm (呼吸性変動に乏しい)。tricuspid regurgitation pressure gradient : 41.1 mmHg

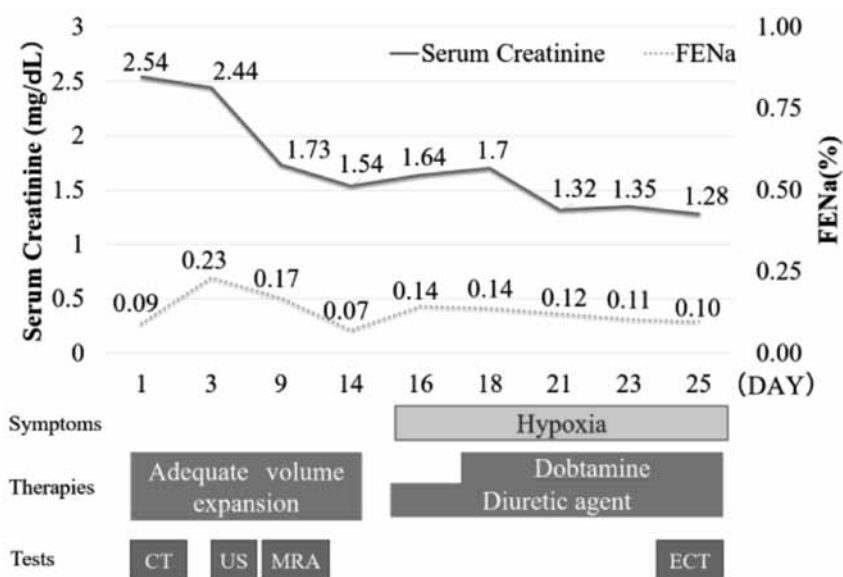
下肢静脈超音波検査 : 左大腿静脈中央～膝窩部の浅大腿静脈に血栓あり

単純 CT : 腹部大動脈瘤, 両側腸骨動脈瘤あり

臨床経過 : バイタルサイン (頻脈, 血圧低下) や FE_{Na} 0.09 % を根拠に, 循環血液量減少に伴う腎前性腎障害と診断した。入院日より細胞外液類似液を中心とした輸液を開始した。血清 Cr 値は徐々に低下したが, FE_{Na} は一時的な増加にとどまり, その後また減少した (Fig. 1)。十分な輸液負荷にもかかわらず, FE_{Na} が増加してこない経過から第 6

Table. Laboratory findings

Hematology		Biochemistry		Endocrinology		
WBC	7,200/ μ L	TP	7.0 g/dL	TSH	1.21 μ U/mL	
Diff		Alb	4.0 g/dL	Free T3	1.92 pg/mL	
Neu	75%	T-Bill	0.76 mg/dL	Free T4	1.21 ng/dL	
Lymph	16.9%	AST	33 IU/L	PRA	3.4 ng/mL/hr	
Mono	7.7%	ALT	34 IU/L	PAC	415 pg/mL	
Eo	0.3%	LDH	345 IU/L	ACTH	42.3 pg/mL	
Baso	0.1%	ALP	236 IU/L	Cortisol	18.9 μ g/dL	
Hemoglobin	13 g/dL	γ -GTP	40 IU/L	Urinalysis		
Platelet	16.4 $\times 10^4$ / μ L	BUN	87.8 mg/dL			
Coagulation		Cr	2.54 mg/dL		SG	1.022
		UA	15.6 mg/dL		Protein	0.11 g/g $\cdot$ Cr
	PT	15.8 second	Na	152.0 mEq/L	RBC	1 $\sim$ 4 /HPF
	APTT	29 second	K	4.7 mEq/L	β_2 -MG	4.1 mg/L
	D-dimer	7.21 μ g/mL	Cl	117.0 mEq/L	NAG	16.3 IU/L
		Ca	9.3 mg/dL	Osmo	707 mOsm/L	
Immunochemistry		IP	6.4 mg/dL	Na	10 mEq/L	
CRP	0.67 mg/dL	HbA1c	6.3 %	FE _{Na}	0.09%	

Fig. 1. The changes in serum creatinine and fractional excretion of sodium (FE_{Na})

CT : computed tomography, US : ultrasonography, MRA : magnetic resonance angiography
ECT : enhanced computed tomography

病日に腎動脈狭窄症を疑い腎動脈超音波検査を施行するも、腸管ガスが多く腎動脈を捉えられなかった。そこで、第7病日に腎動脈MRAを施行したが、明らかな腎動脈狭窄はなかった。その後も輸液を継続していくも、徐々に下腿浮腫が片側性から両側性となっていった。第14病日には

血清Cr値は下げ止まり(Cr 1.54 mg/dL)、翌日には低酸素血症をきたした。胸部X線で肺水腫を認め、輸液過剰負荷によるうっ血性心不全と診断し、利尿薬の投与を開始した。しかし、血清Cr値は悪化傾向となり(Cr 1.7 mg/dL)、第18病日よりドブタミンの投与を開始した。その後、徐々に肺

a | b | c

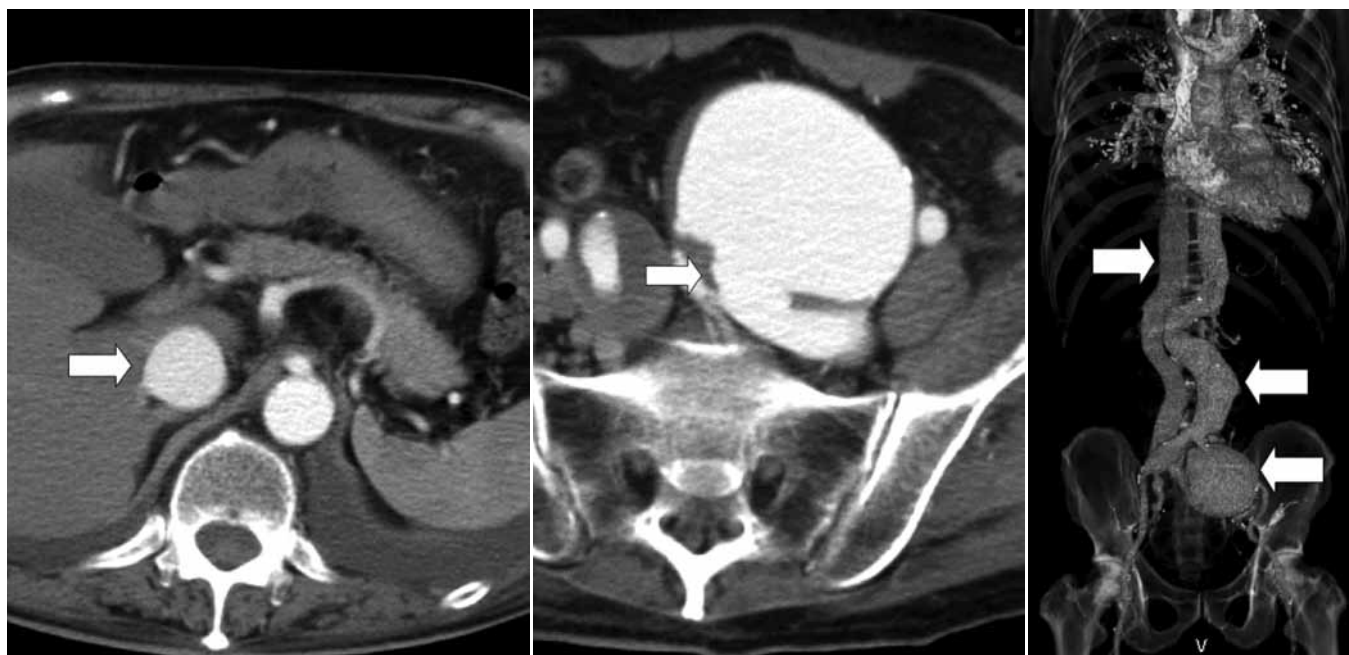


Fig. 2. Early phase-enhanced abdominal computed tomography (CT) findings (a, b) and three-dimensional reconstruction of CT (c)

a, b : Arrows show the inferior vena cava and fistulous communication of the left common iliac artery with vein, respectively.

c : Arrows show the inferior vena cava (upper), aorta (middle) and left common iliac artery aneurysm (lower).

These findings suggest the existence of a shunt blood flow from the left common iliac artery to vein.

水腫と血清 Cr 値の改善傾向を認め、第 25 病日に肺血栓塞栓症や深部静脈血栓症、腎動脈狭窄症の精査目的に造影 CT 撮影をした。

造影 CT (Fig. 2a,b) : 下大静脈は動脈相で早期濃染され、総腸骨動脈瘤と総腸骨静脈に交通を認め、左総腸骨動静脈瘻と診断が確定した。

S 病院心臓血管外科へ転院搬送となり、そのまま緊急手術となった。

手術所見 : 腹部大動脈瘤・総腸骨動脈瘤 - 総腸骨静脈瘻に対して腹部大動脈人工血管置換術を施行

術後経過 : 術後 6 日目には抜管に成功し、その後心不全、腎障害は速やかに改善した (Cr 0.85 mg/dL)。膿胸や誤嚥性肺炎のために術後廃用症候群となるが、状態安定して 4 カ月後に療養目的に転院となった。

考 察

本症例の急性腎障害はバイタルサイン(頻脈, 血圧低下)や FE_{Na} 低値であること, また腎性, 腎後性が否定的なことから腎前性腎障害であると診断した。その理由として, 1)

輸液で循環血液量の減少を十分に補正した後も腎機能の改善は部分的で FE_{Na} 低値が持続した点と, 2) 造影 CT で腸骨動静脈瘻が存在し, 手術により腎機能が完全に回復したことがあげられ, 腸骨動静脈瘻による全身血管抵抗低下と高拍出性心不全による腎血流低下, ショント血流による下大静脈圧上昇による相対的な糸球体濾過圧の低下が急性腎障害の主要因と考えられた。

後天性動静脈瘻の主な原因は外傷性や医原性であり, その他の梅毒, HIV 動脈炎, マルファン症候群, 動脈瘤などが原因となることは稀である³⁾。腸骨動静脈瘻は, 全動静脈瘻のうち 0.4 ~ 1.4% 程の発生頻度でしかない。さらに, その多くは外傷性と椎間板ヘルニア手術に合併する医原性であり, 動脈瘤に起因する報告は少ない。本症例は腹部や骨盤部の外傷や手術歴はなく, また血管炎などを疑う他の症状はないため, もともと存在していた動脈瘤の自然破裂による動静脈瘻であったと考えた。

動静脈瘻の症状や身体所見は原因と程度によってさまざまであるが, 初期には症状に乏しく, 数週間から数年間診断されないことも多い²⁾。局所に認められる症状として, 連続性雑音や振動音, また拍動性の腫瘍があげられるが,

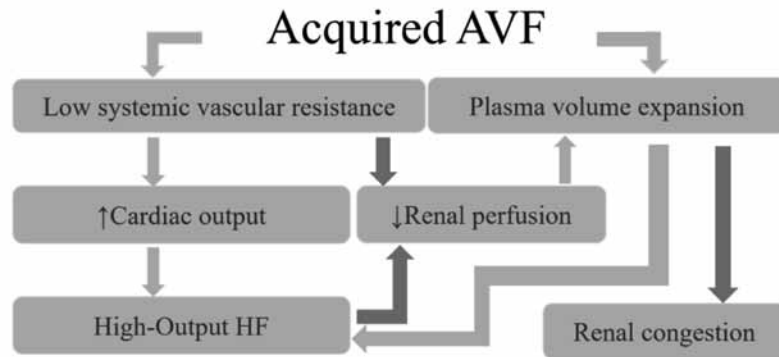


Fig. 3. Pathophysiology of kidney injury induced by acquired arteriovenous fistula

AVF : arteriovenous fistula, HF : heart failure

それらの感度は低く、連続性雑音や振動音は61～74%、拍動性腫瘍は20～32%と報告されている³⁾。全身症状は動静脈間の圧較差により瘻に生じるシャント血流によって心行動態が変化することで説明される⁴⁾。シャント血流により全身血管抵抗は低下し、交感神経の活性化を介して心筋の過収縮・頻拍を引き起こし、心筋の酸素需要が高まる。また、腎血流低下は二次性アルドステロン症を引き起こし、総循環血液量を増加させ、心臓に容量負荷をかける。さらにシャント血流により静脈還流量が増加する。これらの病態が重なって高拍出性心不全に至る⁵⁾。二次性アルドステロン症による総循環血液量増加に加え、シャント血流による静脈還流量の増加は諸臓器のうっ血を引き起こし、浮腫、血尿、直腸出血、うっ血性腎不全⁶⁾などをきたす。

平井らは動静脈瘻が循環動態に及ぼす影響をイヌに大腿動静脈シャントを造設して検証をしている⁷⁾。シャント流量が心拍出量の20%に保持されるようなシャントの開放により、下大静脈圧の増大、大動脈起始部圧の一過性下降、心拍出量の増加が認められた。全末梢血管抵抗は減少傾向を示すも心拍数は不変であった。一方、腎循環の変化については、シャント開放により腎動脈起始部圧が一過性に下降したが、腎血流量および腎血管抵抗には有意な変化はなかった。つまり、シャントの開閉による腎循環動態の変化は心行動態の変化に比してわずかであった。これは、シャント開放時に交感神経緊張によりノルアドレナリンやドパミン濃度が高まるという腎血流の自己調節能が働いているからと考えられている⁸⁾。ヒトにおいても、体流量や血圧低下による腎還流の低下があっても、腎は輸出入細動脈を調節することで糸球体濾過量を維持するような自己調節能を備えている。しかし、高齢者や動脈硬化が高度な症例では自己調節能が破綻しているため、体流量や血圧の軽

度の低下、相対的低下でも糸球体濾過量が低下し、正常血圧虚血性急性腎障害をきたしうる⁹⁾。本症例では、高齢で動脈硬化が進行していたこと、シャント形成から時間が経過していたことなどから、これらの代償機構が破綻し腎血流が低下したと考えられた。さらに、ロサルタン内服も糸球体濾過量の低下に寄与していたと推測される。また、食欲不振の病歴があり、総循環血液量の増大はややマスクされていて肺水腫に至るような左心不全はきたしていなかったが、BNP値1,329.8 pg/mLや下大静脈の拡大といった所見は、体液貯留傾向を示唆していた。この体液貯留に加え、経過中に高拍出性心不全をきたしたことによる下大静脈圧上昇は、相対的な糸球体濾過量の低下を引き起こし、本症例ではそれによる腎障害の病態も合併していたと考えられた。これらの病態の保存的治療は相反するものであり、根本的には物理的な循環動態の破綻を元に戻さない限り、つまり、瘻の閉鎖をしないと腎障害は治癒に至らない。本症例も補液、利尿薬や強心薬による治療のどれをとっても一峰性に改善しなかった経過に合致する。これらの複雑に絡み合った本症例における腸骨動静脈瘻に起因した腎障害の病態生理をFig. 3に整理した。

動静脈瘻の診断にはカラードプラ超音波、造影CT、血管造影などの画像検査が必要である。しかし、超音波は体腔内の動静脈瘻は描出困難であり、造影CTや血管造影は腎機能低下時は造影剤腎症のリスクが高く、腎障害の原因精査目的では積極的には行われないため、診断が遅れる理由となる。本症例では、1)明らかな右心不全がないにもかかわらず下大静脈の拡大があった点、2)輸液で循環血液量の減少を十分に補正したが、腎機能の改善は部分的で FE_{Na} 低値も持続した点が動静脈瘻の存在を疑う重要な手がかりであった。

動静脈瘻の治療は、瘻の閉鎖により循環動態を元に戻すことを目的とする。循環動態への影響が少ない小さな動静脈瘻であれば自然閉鎖することが多く、表層の動静脈瘻ではカラードプラ超音波下での局所圧迫療法が有効とされている¹⁰⁾。深部や大きな動静脈瘻では手術と血管内治療が選択される。手術療法は出血量が多くなるが恒久的な治療となるため、リスクを許容できる有症候性の場合には選択されるべきである。また、血管内治療ができない部位や血管内治療に失敗した場合も手術治療となる。血管内治療はより非侵襲的であるため手術に先行して施行されうるが、漏れやステント狭窄などの合併など限界もある。すでに心不全状態であれば、瘻閉鎖までに心不全がさらに悪化しないかを十分にモニタリングしながら循環動態を管理する必要があり、場合によっては薬物療法で心機能を改善させてから瘻の閉鎖をする¹¹⁾。本症例においては、結果として強心薬の使用により心機能を改善させてからの手術となった。

結 語

本症例は腸骨動脈瘤に形成された動静脈瘻に起因した病態が深く関与した急性腎障害の 1 例である。1) 明らかな右心不全がないにもかかわらず、下大静脈の拡大がある、2) 輸液で循環血液量の減少を十分に補正しても FE_{Na} 低値の改善がみられない、という状況は動静脈瘻の存在を疑う重要な手がかりとなり、本疾患を疑った際には積極的に造影 CT を施行することが早期診断、治療につながる。

謝 辞

本症例の診療にあたり、貴重なご助言をいただき、外科的治療を施行していただいた静岡医療センター心臓血管外科諸先生方に深謝申し上げます。

本症例は、第 36 回静岡東部腎カンファランスにて、「動静脈瘻を伴う腸骨動脈瘤に起因した急性腎障害の一例」として発表した。

利益相反自己申告：申告すべきものなし

文 献

1. 三森明夫, 狩野俊和. 国立国際医療研究センター 内科ハンドブック (第 1 版). 東京: 日本医事新報社, 2011: 165-169.
2. Spencer TA, Smyth SH, Wittich G, Hunter GC. Delayed presentation of traumatic aortocaval fistula: a report of two cases and a review of the associated compensatory hemodynamic and structural changes. *J Vasc Surg* 2006; 43(4): 836-840.
3. Jack LC, Wayne J. *Rutherford's Vascular Surgery, the United States*: Saunders, 2014: 1268-1282.e3.
4. ステファン・シルバーナグル, フロリアン・ラング. 症状の基礎からわかる病態生理 (第 2 版). 東京: メディカル・サイエンス・インターナショナル, 2010: 216-217.
5. Reddy YN, Melenovsky V, Redfield MM, Nishimura RA, Borlaug BA. High-Output Heart Failure: a 15-year experience. *J Am Coll Cardiol* 2016; 68(5): 473-482.
6. 七里 守. Type 1: 急性心腎症候群. *心臓* 2015; 47(5): 536-541.
7. 平井 純. 動静脈間シャントが循環動態におよぼす影響—動物実験ならびに臨床症例による検討—. *奈医誌* 1992; 43: 437-447.
8. 野中秀郎, 神元章雄, 上田明美, 中谷 晃, 斉藤 学, 吉村克敏, 林 勝文, 森田康裕, 塩見直幸, 伴 圭三郎, 法田浩一, 森岡泰子, 岡田耕一, 辻本伸宏, 藤本政彦, 南 繁敏, 野村久美子, 石川兵衛. 組織内カテコラミンに関する研究—プラズミン投与による腎組織内・血中カテコラミン濃度と腎血行動態の変化—. *臨床薬理* 1999; 145-146.
9. Abuelo JG. Normotensive ischemic acute renal failure. *N Engl J Med* 2007; 357: 797-805.
10. Schaub F, Theiss W, Heinz M, Zigel M, Schömig A. New aspects in ultrasound-guided compression repair of postcatheterization femoral artery injuries. *Circulation* 1994; 90(4): 1861-1865.
11. 日本循環器学会, 日本胸部外科学会, 日本高血圧学会, 日本小児循環器学会, 日本心臓血管外科学会, 日本心臓病学会, 日本心臓リハビリテーション学会, 日本心電学会, 日本心不全学会, 日本超音波学会, 日本不整脈学会. 循環器病の診断と治療に関するガイドライン (2010 年度合同研究報告), 急性心不全治療ガイドライン (2011 年改訂版). 日本循環器学会. 2011; accessed November 20, 2016.