

## IV. 添付書類

## 平成23年日本小児外科学会学術集会 発表演題発表ポスター

平成22-23年度厚生労働省難治性疾患克服研究事業  
「日本におけるリンパ管腫患者(特に重症患者の長期経過)の実態調査及び治療指針の作成」

リンパ管腫情報ステーション

## 難治性リンパ管腫の全国実態調査の予備調査結果&lt;治療法について&gt;

平成22-23年度リンパ管腫研究班: 藤野明浩<sup>1)</sup>、森川康英<sup>2)</sup>、上野滋<sup>3)</sup>、岩中督<sup>4)</sup>

1) 国立成育医療研究センター 小児外科  
2) 麗澤義塾大学医学部 小児外科  
3) 東海大学医学部 小児外科  
4) 東京大学大学院医学系研究科 小児外科

## 「日本におけるリンパ管腫患者(特に重症患者の長期経過)の実態調査及び治療指針の作成」

## 【概要】

リンパ管腫は小児外科領域では稀な疾患ではないが、確固たる疫学的データがなく、社会一般における認知度は低い。一定の割合で治療困難な重症・難治性症例が存在し、困難症例の治療法・QOL改善は当疾患における最重要課題である。

平成21年度難治性疾患克服研究事業により当研究が採択され研究班が発足した。特に「重症・難治性のリンパ管腫」に焦点を当て、実態把握、診断基準制定、治療指針作成を目的として、全国調査が企画され、準備として平成21年に「リンパ管腫患者の全国実態調査のための予備調査」が実施された。

## 【方法】

平成21年度に、全国14の小児外科施設に協力を要請し(表1)、リンパ管腫と診断された過去20年間の受診患者について、連結可能匿名化の上、診療録より、疫学的情報、病態、診断、治療、QOL、等につき詳細な調査をおこなった。  
特に各症例毎に初診時の重症度、最終受診時の難治性について、入力者が判断し回答した。  
特にOK-432を中心として難治症例との関連を調べた。

## 【結果1】

<図1>合計620症例が登録され、解析された。  
初診時重症リンパ管腫は10%、最終受診時難治性リンパ管腫と判断された症例は23%に至った。

## &lt;リンパ管腫患者の全国実態調査のための予備調査&gt;

図1. 重症・難治性症例の割合

☆ この症例は初診時重症であったか?

56 34 (%)

●重症 ○中等症 △軽症

☆ この症例は難治性であったか?

37 63 (%)

●Yes ○No

総登録数620例

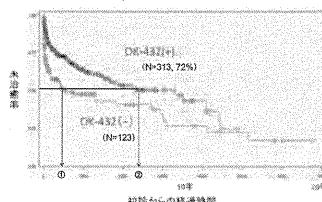
表1. 予備調査に御協力頂いた施設

慶應義塾大学病院 小児外科
東海大学医学部附属病院 小児外科
国立成育医療研究センター 小児外科
聖路加国際病院小児総合医療センター 小児外科
杏林大学医学部附属病院 小児外科
さいたま市立病院 小児外科
総合太田病院 小児外科
埼玉県立小児医療センター 小児外科
東京大学医学部附属病院 小児外科
獨協医科大学越谷病院 小児外科
北里大学病院 小児内科
長崎大学大学院 稽療内科
聖マリア病院 小児外科
独創医療センター 小児外科

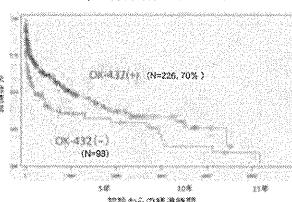
計 14 施設

図2. OK-432治療の有無による治療経過

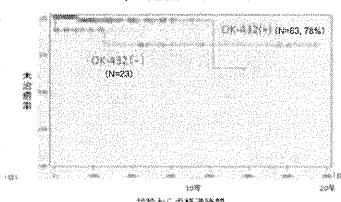
a. 全体 (N=436)



b. 非難治性 (N=324)



c. 難治性 (N=106)



## 【結果2】

<図2>OK-432による硬化療法を行った症例群(あり群)と行わなかった群(なし群)を比較すると、あり群は全体の72%を占めた。50%の症例が消失もしくは著明な縮小にて治療終了に至る期間は、なし群では450日(図2a ①)、あり群では2316日(図2a ②)であり、ログラフ検定にてなし群の方が有意に早い( $p < 0.001$ )ことが示された。難治例に対してはOK-432の有無に関わらず治療効果が乏しい(図2c)。

## 【結果3】

<表2、3>初期治療の選択と最終的な効果の相関を調べた。治療法の選択はランダムではないため、治療法間の比較は不能だが、それぞれの治療法を選択した場合の効果の程度の目安となる結果である。

<表2>外科的切除により難治性・非難治性それぞれ94%、98%最終的に縮小もしくは消失が得られた。一方初回にOK-432を選択した症例は難治性において約1/3の症例にて不变。

## 【考察】

OK-432治療は侵襲が少なく、比較的有効率が高い治療として我が国では一般的に用いられている。今回の大規模調査にて、より有効率の高い外科的切除を選択しにくい症例に対してはOK-432を選択することになり、その場合は治療終了までの期間が非使用例よりも一般的に長くなると考えられた。また難治症例に対しての効果は限定的であった。

## 【結語】

OK-432治療を越える有効な非侵襲的治療法の開発が待たれる。

表2. 初回治療選択と効果

初期治療選択	内視鏡	穿刺	手術	薬物	その他	合計	内視鏡 (%)	穿刺 (%)	手術 (%)	薬物 (%)	その他 (%)
内視鏡	448/521	19/521	11/521	1/521	1/521	521	86.1%	3.8%	2.1%	0.2%	0.2%
穿刺	9/521	41/521	0/521	0/521	0/521	521	1.7%	78.3%	0.0%	0.0%	0.0%
手術	11/521	0/521	9/521	0/521	0/521	521	2.1%	0.0%	1.7%	0.0%	0.0%
薬物	0/521	0/521	0/521	1/521	0/521	521	0.0%	0.0%	0.0%	0.2%	0.0%
その他	1/521	0/521	0/521	0/521	1/521	521	0.2%	0.0%	0.0%	0.0%	0.2%
合計	468/521	19/521	11/521	1/521	1/521	521	89.0%	3.8%	2.1%	0.2%	0.2%

表3. 初回・2回目治療選択と効果(参考)

初期治療	内視鏡	穿刺	手術	薬物	合計	内視鏡 (%)	穿刺 (%)	手術 (%)	薬物 (%)	合計 (%)
内視鏡	448/521	19/521	11/521	1/521	521	86.1%	3.8%	2.1%	0.2%	100.0%
穿刺	9/521	41/521	0/521	0/521	521	1.7%	78.3%	0.0%	0.0%	100.0%
手術	11/521	0/521	9/521	0/521	521	2.1%	0.0%	1.7%	0.0%	100.0%
薬物	0/521	0/521	0/521	1/521	521	0.0%	0.0%	0.0%	0.2%	100.0%
その他	1/521	0/521	0/521	0/521	521	0.2%	0.0%	0.0%	0.0%	100.0%
合計	468/521	19/521	11/521	1/521	521	89.0%	3.8%	2.1%	0.2%	100.0%

## リンパ管腫内リンパ液動態の検討

独立行政法人国立成育医療研究センター外科系専門診療部外科

独立行政法人国立成育医療研究センター放射線診療部

藤野 明浩<sup>1</sup>, 北村 正幸<sup>2</sup>, 黒田 達夫<sup>3</sup>, 北野 良博<sup>4</sup>, 森川 信行<sup>5</sup>, 田中 秀明<sup>6</sup>,  
高安 駿<sup>7</sup>, 武田 恵子<sup>8</sup>, 鈴東 昌也<sup>9</sup>, 松田 諭<sup>10</sup>, 山根 格介<sup>11</sup>, 正木 英一<sup>12</sup>

### Study of lymphatic flow in lymphangioma

Akihiro Fujino, Masayuki Kitamura, Tatsuo Kuroda, Yoshihiro Kitano, Nobuyuki Morikawa, Hideaki Tanaka,  
Hajime Takayaso, Noriko Takeda, Masaya Suzuhigashi, Satoshi Matsuda, Yusuke Yamane, Hidekazu Masaki  
Division of Surgery, Department of Surgical Subspecialties and Department of Radiology, National Center for Child  
Health and Development, Tokyo, Japan

リンパ学 第34巻 第1号 別刷

2011年7月31日

(Japanese Journal of Lymphology)

Vol. 34 No. 1, July 2011

