

例(32%)が生後10歳未満で発症した。血管奇形の家族歴は、15例(1%)に見られた。

## 2. 部位情報

主な部位(登録2424例、重複あり)は、頭頸部662例(42%)、下肢626例(26%)、上肢506例(21%)、体幹部277例(11%)であった。病変の深さ(登録2217例)は、皮下までが1034例(47%)、深部までが1183例(53%)であった。最大病変の大きさ(登録2217例)は、10cm以上605例(28%)、5-10cm 538例(24%)、5cm未満 1043例(47%)、不明27例(1%)であった。

## 3. 症状情報

症状(登録2201例、複数選択可)は、疼痛1002例(46%)、腫脹1156例(53%)、整容障害933例(42%)、出血99例(4%)、潰瘍18例(1%)、感染14例(1%)であった。機能障害(登録264例、複数選択可)は、下肢84例、出血傾向12例、眼瞼眼球21例、呼吸・心24例、咀嚼・嚥下30例、構音18例、鼻18例、耳1例、手部・上肢68例、体幹・生殖器4例、中枢・末梢神経32例であった。

## 4. 診断情報

診断の根拠(登録2217例、複数選択可)は、画像診断1820例(82%)、病理診断252例(11%)、臨床診断1970例(89%)であった。有用な画像診断は、MRI1787例(81%)、超音波1277例(58%)、血管造影265例(12%)、CT193例(9%)、単純X線47例(2%)、核医学4例(0%)であった。

## 5. 治療情報

当該施設での治療回数(登録2217例、複数選択可)は、切除が、1-2回528例(24%)、3-5回25例(1%)、6回以上3例(0%)、硬化療法が、1-2回704例(32%)、3-5回231回(10%)、6回以上89例(4%)、塞栓術が、1-2回14例(1%)、3-5回(0%)、レーザーは、1-2回33例(2%)、3-5回20例(1%)、6回以上6例(0%)であった。保存的治療は311例(14%)に行われた。入院回数は、1-2回 909例(41%)、3-5回 200例(9%)、6回以上 63例(3%)であった。

治療転帰(登録1577例)は、改善1077例(68%)、治癒308例(19%)、不变156例(10%)、悪化10例(1%)、不明26例(2%)であった。難治性と判断されたのは505例(23%)であった。

最大重症度(登録2217例)は、1が1576例(71%)、2が395例(18%)、3が180例(8%)、4が57例(3%)、5が9例(0%)で、4と5を合わせた

重症例は66例(3%)であった。

## D. 考察

本検討では、静脈奇形の頻度は女性に多く、生下時～小児期の発症が多い傾向を認めた。また、約1%に家族性(遺伝性)が見られた。病変部位は、頭頸部・下肢・上肢・体幹部の順に多く、約半数で深部組織に及んだ。大きさは5cm未満が約半数で、10cm超も約3割に見られた。大半が疼痛・腫脹を主訴とし、1割強で様々な機能障害を認めた。診断根拠は、臨床診断及び画像診断が中心で、特に超音波とMRIが多かった。

治療は、保険適応外の硬化療法が切除より多く、低侵襲故に主流と思われた。保存治療を含め約9割の患者で治癒または改善が得られた。漠然と「血管腫」ではなく、静脈奇形の的確な診断のもとに治療に臨むことが重要と思われた。

重症度は71%が1度で、重症は3%と少数であった。一方、難治性は23%にのぼり、重症例と頻度の乖離が見られた。理由として、軽症でも根治が得られにくいこと、大きさや部位によっては治療困難なこと、などが要因として考え得る。

## E. 結論

登録された2217例の静脈奇形について、疫学・症状・診断・治療・重症度についての解析を報告した。

## F. 研究発表

### 1. 論文発表

1. 大須賀慶悟：AVMに対するエタノール塞栓療法. IVR学会誌2013, 28(1):83-86
2. 野村元成, 上原秀一郎, 大須賀慶悟, 他：四肢と肩甲骨部の動静脈奇形に対して血管内治療が奏効した2例. 日本小児外科学会雑誌2013, 49(1):62-65
3. 中澤哲郎、大須賀慶悟、東原大樹、他：末梢AVMの治療戦略と血管内治療の実際. 日本血管内治療学会誌 2012, 13:22-26
4. 大須賀慶悟、波多祐紀、上原秀一郎：血管腫・血管奇形の臨床診断と画像診断. 画像診断2012, 32(10):994-1003
5. 大須賀慶悟、波多祐紀：動静脈奇形

(AVM)に対する塞栓療法. PEPARS

2012, 71:53-59

(欧文)

1. Higashihara H, Osuga K, Ueguchi T, et al. Usefulness of contrast-enhanced three-dimensional MR angiography using time-resolved imaging of contrast kinetics applied to description of extracranial arteriovenous malformations: initial experience. Eur J Radiol 2012; 81:1134-1139

## 2. 学会発表

(国内)

1. 中村純寿、大須賀慶悟、東原大樹、他  
歯肉出血を来たした上顎 AVM に対して経皮的 NBCA 塞栓術が奏効した 1例. 日本IVR学会第32回中部・第31回関西合同地方会 2012年2月、大阪
2. 大須賀慶悟. 頭頸部血管奇形の診断と血管内治療の実際. 第7回ニッチ脳神経脈管カンファレンス 2012年5月、大阪
3. 大須賀慶悟. 血管奇形の診断と治療  
IVR医の立場から. 第4回血管腫・血管奇形講習会 2012年7月、長崎
4. 大須賀慶悟、中澤哲郎、東原大樹、他

: 末梢AVMの病態と画像診断. 日本脈管学会

2012年10月、東京

5. 大須賀慶悟. 血管腫・血管奇形の診断とIVR治療の役割. 日本歯科放射線学会 第17回臨床画像大会2012年10月、大阪

(海外)

1. Osuga K. Use of absolute ethanol for embolization of peripheral AVMs. 10th Asia-Pacific Congress of Cardiovascular Interventional Radiology, Kobe, May 30-June 2, 2012.
2. Osuga K. Treatment strategy around vascular embolotherapy of peripheral AVMs. 10th Asia-Pacific Congress of Cardiovascular and Interventional Radiology. Kobe, May 30-June 2, 2012.

## G. 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

- 1 特許取得  
該当なし
- 2 実用新案登録  
該当なし
- 3 その他  
該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業））  
難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班患者実態調査および治療法の研究

分担研究報告書

血管腫・血管奇形全国調査の調査結果  
動脈奇形に関する解析

研究協力者 芝本健太郎 川崎医科大学放射線医学（画像診断2） 講師

研究要旨

本研究班で実施した血管腫・血管奇形全国調査で登録された患者のうち動脈奇形586例について、疫学・症状・診断法・治療法について後ろ向きに集計及び解析を行った。動脈奇形は生下時～20歳未満での発症が多く、高齢になるほど少ない傾向であった。血管奇形に関わる家族歴は0.2%のみでみられ、大部分は孤発例であった。病変部位は、頭頸部・下肢・上肢・体幹の順に多く、大きさは10cm以上の大きな病変が約4割で最も多かった。症状は、腫脹・疼痛・整容障害が多く、Schöbinger病期分類はⅢ期が約半数を占めた。診断の根拠としては臨床診断・画像診断が多く、画像診断としてはMRI・超音波が多く用いられた。治療は、塞栓術・硬化療法・切除術が多く施行されていた。治療の転帰は改善が約6割・治癒が約2割であり、治療が有効な症例が多かった。

A. 研究目的

本研究班で実施された血管腫・血管奇形全国調査を基に、動脈奇形に関する疫学・症状・診断・治療の実態を把握することを目的とした。

B. 研究方法

本研究班では、全国の日本形成外科学会・日本IVR学会の認定施設を対象に、平成21年1月から23年12月に当該施設を受診した血管腫・血管奇形患者の症例登録による実態調査を行った。本分担研究では、このうち動脈奇形と診断された患者について、疫学・症状・診断法・治療法について後ろ向きに集計及び解析を行った。

（倫理面への配慮）

本調査の実施については研究代表者・研究分担者が所属する以下の研究機関の倫理委員会の承認が得られている。

1. 川崎医科大学（平成24年9月15日承認）

2. 長崎大学（平成24年10月29日承認）

3. 千葉大学（平成24年11月27日承認）

4. 大阪大学（平成24年12月13日承認）

症例登録データは連結可能匿名化し、照合表は各施設担当者が管理した。公開データに個人情報は含まれない。Web登録システムはIS027001/ISMS認証取得業者に委託した。対象患者の人権は擁護され、不利益並びに危険性は生じないと考えられる。

C. 研究結果

①患者基本情報

登録された動脈奇形は586例で、平均年齢は40歳（0～97歳）であった。

性別は、女性309例（53%）、男性277例（47%）であった。

初発時期については470例で明らかであった。生下時での発症が99例（21%）と最も多く、以下10歳以上15歳未満での発症が57例（12%）、15歳以上20歳未満での発症が43例

(9%)、5歳未満での発症が42例(9%)と続き、全体としては高齢になるほど少ないと傾向であった。

血管奇形に関わる家族歴は回答のあった495例中、あり1例(0.2%)、なし399例(81%)、不明95例(19%)であった。

#### ②病変部位情報

病変部位は1箇所のみの症例が554例(95%)、2箇所が23例(4%)、3箇所が2例(0.3%)、4箇所が1例(0.2%)、5箇所以上が6例(1%)で、登録された病変の総数は計640病変であった。

計640病変のうち、占拠部位は頭頸部が最も多く262病変(41%)、次いで下肢が157病変(24%)、上肢152病変(24%)、体幹69病変(11%)であった。各症例の最深病変の深さについては、筋肉骨韌帯などに進展する病変が399例(68%)、皮膚皮下までが187例(32%)であった。最大病変の大きさについては、10cm以上の病変が227例(39%)と最も多く、次いで5cm未満の病変が189例(32%)、5cm以上10cm未満の病変が154例(26%)、不明・その他16例(3%)であった。

#### ③症状情報

受診時及び既往症状(登録579例、複数選択可)は539例(93%)で認められた。症状は腫脹358例(62%)、疼痛285例(49%)、整容障害248例(43%)の順に多く、その他、局所の出血が136例(23%)、潰瘍が93例(16%)、感染が23例(4%)、症状なし40例(7%)であった。機能的障害(複数選択可)は125例(21%)で認められ、手部・上肢機能障害が43例、下肢機能障害が38例と多かった。

Schöbinger病期分類(登録483例)は、I期47例(10%)、II期169例(35%)、III期243例(50%)、IV期15例(3%)、判定困難が9例(2%)であった。

#### ④診断情報

診断の根拠(複数選択可)としては、臨床診断509例(87%)、画像診断535例(91%)が多く、病理診断は55例(9%)で得られた。診断に有用な画像診断(複数選択可)としてはMRI417例(71%)、超音波368例(63%)、CT299例(51%)、血管造影274例(47%)、単純レントゲン11例(2%)、無

し24例(4%)であった。

#### ⑤治療情報

他院での治療(登録585例)は、193例(33%)で施行されていた。当該施設での治療は440例(75%)で施行されていた。当該施設での治療としては、塞栓術が218例(37%)、硬化療法が208例(35%)、切除術が197例(34%)、保存的治療が120例(20%)、レーザーが20例(3%)で施行されていた。全ての治療を含めた転帰(登録439例)は、治癒80例(18%)、改善267例(61%)、不变61例(14%)、悪化22例(5%)、不明9例(2%)であった。

入院回数は、なし182例(31%)、1~2回が259例(44%)、3~5回が103例(18%)、6回以上が41例(7%)、回数不明が1例(0.2%)であった。

難治性か否かについての主治医判断については、難治性と判断された症例が281例(48%)、難治性ではないと判断された症例が242例(41%)で、不明63例(11%)であった。

受けた医療費助成は自立支援医療制度が3例(0.5%)、小児慢性特定疾患治療研究事業が2例(0.3%)、東京都難病医療費等助成制度が1例(0.2%)、無しが508例(87%)、不明が72例(12%)であった。

最大重症度は、1が296例(51%)、2が111例(19%)、3が107例(18%)、4が53例(9%)、5が19例(3%)で、4と5を合わせた重症例は72例(12%)であった。

## D. 考察

本検討では、動静脈奇形は生下時~20歳未満での発症が多く、高齢になるほど少ない傾向であった。血管奇形に関わる家族歴は0.2%のみでみられ、大部分は孤発例であった。病変部位は、頭頸部・下肢・上肢・体幹の順に多く、大きさは10cm以上の大きな病変が約4割で最も多かった。

症状は、腫脹・疼痛・整容障害が多かつたが、局所の出血と潰瘍も2割前後でみられた。Schöbinger病期分類はIII期が約半数を占めた。

診断の根拠としては臨床診断・画像診断が多く、画像診断としてはMRI・超音波が多

く用いられた。

治療は、塞栓術・硬化療法・切除術が多く施行されていた。治療の転帰は改善が約6割・治癒が約2割であり、治療が有効な症例が多くかった。医療費助成は大部分の症例で受けていなかった。重症例は12%でみられた。経済的負担が大きいと予想される重症例においても医療費助成が受けられない実態が明らかとなつた。

#### E. 結論

登録された586例の動静脈奇形について、

疫学・症状・診断・治療の実態およびその解析を報告した。

#### G. 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

- 1 特許取得  
該当なし
- 2 実用新案登録  
該当なし
- 3 その他  
該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業））  
難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班患者実態調査および治療法の研究

分担研究報告書

血管腫・血管奇形全国調査の調査結果  
リンパ管奇形に関する解析

研究分担者 秋田定伯 長崎大学病院 形成外科講師

研究要旨

リンパ管奇形についてサブ解析した。平成24年度は本研究班の研究代表者・分担者が所属する施設を対象として予備調査を実施し、平成25年度には全国実態調査を実施した。本稿では全国調査の結果を報告である。平成24年度は、本研究班の研究代表者・分担者が所属する5施設の血管奇形患者343例を対象として、全国実態調査に向けた予備調査を実施した。症例登録システムはほぼ妥当と判断され、全国調査実施した。リンパ管奇形患者の男女比については、従来から1:1とされており、われわれの検討においても同様であった。リンパ管奇形患者の発症時期としては10歳未満が多いと報告されてきたが、我々の調査でも同様に生下時～若年での発症が多い傾向が示された。

遺伝性の血管奇形は存在するが比較的稀であり、血管奇形の大部分は孤発性とされる。今回の解析でもリンパ管奇形関連の家族歴が認められた症例はみあたらず、大部分は孤発性と考えられる。

病変の占居部位については、過去の複数の報告で頭頸部が多く、体幹が続き、上下肢がそれに続くという傾向が示された。また、今回の解析では、深部（筋肉骨韌帯など）に進展する病変が多く、大きさについては分類項目の各サイズで比較的偏りなく見られた。リンパ管奇形の治療において、病変の大きさや広がりが治療効果・予後に関わることが知られており、これらの情報の把握は重要と思われる。

今回の解析では受診時及び既往症状が認められた症例は86.9%にのぼった。過去の調査と比較し、本調査では腫脹、整容障害が比較的多い傾向が見られ、頭頸部病変が比較的多いことがその要因として考えられる。

リンパ管奇形の治療については、硬化療法、切除術が比較的多数受けており、治療を受けた患者の多くで良好な治療効果（治癒または改善、85%）が得られている傾向がみられた。

重症度分類では1度の症例が64%と最も多く、重症の症例（4、5度）は合わせて約4%であった。一方、主治医の主観により難治性であると判断された症例は28%にのぼった。この重症度と難治度の頻度が乖離している理由として、難治性と判断された症例には、症状や機能的障害は比較的軽いものの、治療により根治が得られにくいことや、大きさや部位等の要因により治療の施行自体が困難であるものも含まれることが関与している可能性がある。重症度についての詳細な検討、および重症度分類の検証も、施行する予定である。また、今回調査した医療機関に所属していない専門分野での調査を加える事も重要である。

A. 研究目的

本研究班では血管腫・血管奇形の患者概

数および難治性血管奇形の患者概数、症状  
・診断・治療の実態を把握する目的で、全国多施設協力体制の下、本邦初の血管腫・血管奇形患者の全国実態調査を行い、リンパ管奇形についてサブ解析した。平成24年度は本研究班の研究代表者・分担者が所属する施設を対象として予備調査を実施し、平成25年度には全国実態調査を実施した。本稿では全国調査の結果を報告する。

## B. 研究方法

### 1. 全国疫学調査と重症度分類の完成・検証

本研究では、血管腫・血管奇形患者の実数、病状、診断、治療等の実態を把握する目的で、本邦初の多施設から成る血管腫・血管奇形患者の症例登録による全国実態調査を行った。対象は平成21年1月から23年12月に当該施設を受診（外来・入院を含む）した血管奇形の患者のうち、静脈奇形（海綿状血管腫）、リンパ管奇形（リンパ管腫）、動静脈奇形、混合型血管奇形（症候群を含む）の患者で、毛細血管奇形（単純性血管腫・ポートワイン斑）単独は除いた。

平成24年度は患者登録項目を決定し、web登録システムを作成した。研究代表者、分担者等の施設における予備調査を施行し343例が登録された。この結果からweb登録システムはほぼ妥当と判断され、平成25年度は全国調査を行った。日本形成外科学会・日本IVR学会の認定施設を対象施設とした。研究協力者は自施設での登録を担当すると共に、関連の施設に登録を促した。患者登録項目の中で、患者基本情報、病変部位情報、症状情報、診断情報、治療情報は主にそれぞれの頻度を評価した。

重症度分類は平成23年度までの研究班で作成された案を、平成24年度の疫学調査予備調査の結果から修正して平成25年7月に完成了。平成25年度全国調査の中で検証のための重症度の調査が行われた。5段階の重症度4、5を重症と判断し、その頻度を評価した。重症度分類は検証を基に改訂を行う事とした。

### （倫理面への配慮）

- 血管腫・血管奇形患者の全国実態調査とその予備調査の解析については研究代表者・研究分担者が所属する以下の研究機関の倫理委員会の審査・承認が得られている。  
1. 川崎医科大学（平成24年9月15日承認）  
2. 長崎大学（平成24年10月29日承認）  
3. 千葉大学（平成24年11月27日承認）  
4. 大阪大学（平成24年12月13日承認）

本調査は後ろ向きに集計、解析を行うものである。症例登録データは連結可能匿名化し、患者カルテ番号、氏名、匿名番号の対応表は各施設の担当者が管理する。公開するデータに個人情報は含まれない。Web登録システムはISO27001/ISMS認証（一般財団法人日本情報経済社会推進協会による情報セキュリティマネジメントに対する第三者適合性評価制度）を取得している業者に委託した。研究代表者は、各施設から匿名化されたデータを、web登録システムを介して受け取る。調査終了後、匿名化されたデータは研究班が保持する。対応表は各施設の担当者が保管する。対象となる患者の人権は擁護され、不利益並びに危険性は生じないと考えられる。

## C. 研究結果

研究期間は2年間であり、主たる研究課題である全国疫学調査は、登録施設の倫理審査に時間を要したため当初の予定よりや遅れたが、ほぼ順調に遂行されている。

平成24年度は、本研究班の研究代表者・分担者が所属する5施設の血管奇形患者343例を対象として、全国実態調査に向けた予備調査を実施した。症例登録システムはほぼ妥当と判断され、全国調査に進むことになった。

平成25年度は全国調査を行い、症例登録期間は平成25年7月16日～平成26年2月8日であった。結果を以下に示す。

### ① 患者基本情報

リンパ管奇形登録患者の457例において、平均年齢は17.2歳（標準偏差16.3、中央値12.0歳、範囲0～85歳）であった。

性別は、女性229例（50%）、男性228例（50%）であった。

初発時期については425例で明らかであった。生下時での発症が218例（51.3%）、5歳未満での発症が112例（26.4%）が多く、高齢になるほど少ないと傾向があった。

血管奇形に関わる家族歴は回答のあった429例中377例（88%）がなしであり52例（12%）が不明であった。

## ② 病変部位情報

492病変（一部症例により重複）のうち、占拠部位は頭頸部が最も多く217病変（44%）、次いで体幹が117病変（24%）、下肢81病変（16%）、上肢77病変（16%）であった。各症例の最深病変の深さについては、筋肉骨韌帯などに進展する病変が457例中156例（34%）、皮膚皮下までが301例（66%）であった。最大病変の大きさについては、5cm以上10cm未満の病変が457例中154例（34%）と最も多く、次いで5cm未満が149例（33%）、10cm以上が141例（31%）、不明・その他13例（2%）であった。

## ③ 症状情報

受診時及び既往症状は457例中397例（86.9%）で認められた。症状は腫脹121例（26.5%）、腫脹と主観的整容障害73例（16.0%）、主観的整容障害58例（12.7%）を呈した患者が多かった。

## ④ 治療情報

他院での治療は457例中117例（26%）で施行されており、当該施設での治療としては硬化療法が218例（47.7%）で施行されており、最も多く、切除術は123例（26.9%）に実施された。全ての治療を含めた転帰は、329例中 改善235例（71%）、治癒45例（14%）、不变37例（11%）、悪化3例（1%）、不明9例（3%）であった。

入院回数は、457例中 1~2回が195例（43%）、なしが例中181例（40%）、3~5回が61例（13%）、6回以上が20例（4%）であった。

難治性か否かについての主治医判断については、難治性と判断された症例が457例中126例（28%）、難治性ではないと判断された症例が238例（52%）で、不明93例（20%）

であった。

## ⑤ 重症度分類

重症度分類は研究方法の通り、平成23年度までの研究班で作成された案を、疫学調査予備調査の結果から修正して完成させ、全国調査にて検証のための重症度の調査が行われた。中間解析の結果では重症度は457例中1度が294例（64%）で最も多かった。重症度4度あるいは5度の重症例は合わせて19例（4%）であった。なお重症度分類は調査を基に検証し改訂を行う。

## D. 考察

平成24年度の予備調査は、全国調査を行うにあたってその調査項目や調査方法の妥当性を検証するための調査であり、対象症例は「難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班」の研究代表者・分担者が所属する5施設の症例（うち2施設が形成外科、3施設が放射線科の症例）で行われた。予備調査により、構築したWeb登録システムを用いて全国調査を行うことにより、本邦における血管奇形患者の実態を把握できる見通しが示された。

全国調査の中間解析の結果からは以下の知見が推定される。リンパ管奇形患者の男女比については、従来から1:1とされており、われわれの検討においても同様であった。リンパ管奇形患者の発症時期としては10歳未満が多いと報告されてきたが、我々の調査でも同様に生下時～若年での発症が多い傾向が示された。

遺伝性の血管奇形は存在するが比較的稀であり、血管奇形の大部分は孤発性とされる。今回の解析でもリンパ管奇形関連の家族歴が認められた症例はみあたらず、大部分は孤発性と考えられる。

病変の占居部位については、過去の複数の報告で頭頸部が多く、体幹が続き、上下肢がそれに続くという傾向が示された。また、今回の解析では、深部（筋肉骨韌帯など）に進展する病変が多く、大きさについては分類項目の各サイズで比較的偏りなく見られた。リンパ管奇形の治療において、

病変の大きさや広がりが治療効果・予後に関わることが知られており、これらの情報の把握は重要と思われる。

今回の解析では受診時及び既往症状が認められた症例は86.9%にのぼった。過去の調査と比較し、本調査では腫脹、整容障害が比較的多い傾向が見られ、頭頸部病変が比較的多いことがその要因として考えられる。

リンパ管奇形の治療については、硬化療法、切除術が比較的多数受けしており、治療を受けた患者の多くで良好な治療効果（治癒または改善、85%）が得られている傾向がみられた。

重症度分類では1度の症例が64%と最も多く、重症の症例（4、5度）は合わせて約4%であった。一方、主治医の主観により難治性であると判断された症例は28%にのぼった。この重症度と難治度の頻度が乖離している理由として、難治性と判断された症例には、症状や機能的障害は比較的軽いものの、治療により根治が得られにくいことや、大きさや部位等の要因により治療の施行自体が困難であるものも含まれることが関与している可能性がある。重症度についての詳細な検討、および重症度分類の検証も、施行する予定である。また、今回調査した医療機関に所属していない専門分野での調査を加える事も重要である。

## E. 結論

2年間で本疾患実態調査のための全国疫学調査およびその予備調査を行い、平成25年11月23日までデータを用い、約3239例の中間解析の結果を報告した。登録締め切りは平成26年1月31日であり、この結果により、診療実態の把握を行い、最終報告を行う。

## F. 研究発表

### 1. 論文発表

（和文）

1. 松井裕輔、三村秀文、大須賀慶悟、秋田定伯、渡部茂、力久直昭、田中純子、森井英一、高倉伸幸、佐々木了. 血管腫・血管奇形の全国実態調査に向けての予備調査結果の報告. IVR会誌 in press

2. 力久直昭、小坂健太朗、松井裕輔、三

村秀文、大須賀慶悟、秋田定伯、渡部茂、佐々木了. 血管腫・血管奇形の全国疫学調査に向けての予備調査結果の報告-重症度と難治性の分析-. 日形会誌. 2013, 33:583-590

（欧文）

1. Akita S, Houbara S, Akatsuka M. Imaging, vascular assessment: Extension in depth and vascular anomalies. Skin Necrosis, Eds. Teot L, Meaume S, Del Mamol V, Akita S, Ennis WI, Springer-Verlag, Heidelberg, in press.
2. Akita S, Houbara S, Akatsuka M, Hirano A. Vascular anomalies and wounds. J Tissue Viability, 22: 103-11, 2013

### 2. 学会発表

（国内）

1. 三村秀文、大須賀慶悟、松井裕輔、力久直昭、秋田定伯、佐々木了、森井英一、高倉伸幸、田中純子. 血管腫・血管奇形全国疫学調査の概要と症例登録のお願い. 血管腫・血管奇形IVR研究会2013年5月、軽井沢
2. 松井裕輔、三村秀文、力久直昭、大須賀慶悟、渡部茂、秋田定伯、佐々木了. 血管腫・血管奇形全国疫学調査予情調査の結果報告 1総合的分析. 血管腫・血管奇形IVR研究会2013年5月、軽井沢
3. 力久直昭、三村秀文、松井裕輔、大須賀慶悟、渡部茂、秋田定伯、佐々木了. 血管腫・血管奇形全国疫学調査予情調査の結果報告 2重症度分類作成と評価. 血管腫・血管奇形IVR研究会2013年5月、軽井沢
4. 三村秀文、大須賀慶悟、松井裕輔、渡部茂、力久直昭、秋田定伯、佐々木了、森井英一、高倉伸幸、田中純子. 血管腫・血管奇形全国疫学調査の概要と症例登録のお願い. 血管腫・血管奇形研究会、血管腫・血管奇形研究会・血管腫・血管奇形講習会、盛岡、2013年7月、盛岡
5. 松井裕輔、三村秀文、力久直昭、大須賀慶悟、渡部茂、秋田定伯、佐々木了. 血管腫・血管奇形全国疫学調査予情調査の結果報告 1総合的分析. 血管腫・血管奇形研

究会・血管腫・血管奇形講習会2013年7月、  
盛岡

6. 力久直昭、三村秀文、松井裕輔、大須  
賀慶悟、渡部茂、秋田定伯、佐々木了。血管  
鍾・血管奇形全国疫学調査予情調査の結  
果報告 2重症度分類作成と評価。血管腫・  
血管奇形研究会・血管腫・血管奇形講習会  
2013年7月、盛岡

7. 田中克弥、秋田定伯、芳原聖司、石野  
憲太郎、平野明喜。顔面頸部リンパ管奇形  
に合併した両側感音性難聴を伴ったWegener  
肉芽腫症患者。第91回日本形成外科学会九  
州支部、2013年3月、福岡

8. 芳原聖司、赤塚美保子、吉本 浩、秋  
田定伯、平野明喜。血管奇形が疑われ硬化  
療法を併用した悪性腫瘍の治療経験。第56  
回日本形成外科学会学術集会、2013年4月、  
東京

9. 秋田定伯、芳原聖司、赤塚美保子、平  
野明喜。当科における動静脈奇形治療の検  
討。第56回日本形成外科学会学術集会、  
2013年4月、東京

10. 赤塚美保子、芳原聖司、秋田定伯、  
平野明喜。下顎部周囲のケロイド、血管奇  
形治療時のオトガイ形成の有用性。第56回  
日本形成外科学会学術集会、2013年4月、東  
京

11. 吉田周平、浜田裕一、Rodrigo Hamuy、  
吉本 浩、中島正博、平野明喜、秋田定伯。

下肢リンパ浮腫モデルにおける脂肪由来幹  
細胞を用いたリンパ管再生療法。第43回日  
本創傷治癒学会、研究奨励賞講演、2013年  
11月、別府

#### (海外)

1. Akita S. Vascular anomalies: its etiology and wound management with minimal invasive ultrasonic-assisted therapy. 5th International Workshop of Wound Technologies, Paris, January 20–22, 2013
2. Yoshida S, Hamada Y, Hamuy R, Yoshimoto H, Nakashima M, Hirano A, Akita S. Adipose-derived stem cell transplantation for therapeutic lymphangiogenesis in a mouse model of lymphedema. SAWC/WHS annual meeting, Denver, USA, May 1–4, 2013

#### G. 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

- 1 特許取得  
該当なし
- 2 実用新案登録  
該当なし
- 3 その他  
該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等克服研究事業(難治性疾患克服研究事業)  
難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班患者実態調査および治療法の研究

### 分担研究報告書

## 血管腫・血管奇形全国調査の調査結果 混合型奇形・症候群に関する解析

研究協力者 栗田昌和 杏林大学形成外科 助教

研究分担者 佐々木了

KKR札幌医療センター斗南病院形成外科・血管腫血管奇形センター センター長

研究協力者 長尾宗朝 岩手医科大学形成外科 助教

### 研究要旨

血管腫・血管奇形の全国調査で登録された混合型もしくは症候群として登録された症例440例について、統計的な検討を行った。混合型にはVM（静脈奇形）, LM（リンパ管奇形）, CM（毛細血管奇形）, AVM（動静脈奇形）のうち複数の成分を含むが、Klippel-Trenaunay症候群, Parkes Weber症候群など固有の呼称をもつ症候群としての診断にいたらないと登録者が判断した症例が含まれる。本研究は、本邦はもちろんのこと報告者の認識する範囲で最大数の症例情報を収集した研究となった。脈管奇形の中でも治療の難度が高いと考えられるこれらの病型症例においても、従来より行われている切除術と同等、もしくはそれ以上に高頻度に硬化療法が治療方法として採用されており、高率に病態の改善を得ていたことが本研究で明らかになった

### A. 研究目的

員会の承認が得られている。

### B. 研究方法

平成25年7月16日～平成26年2月8日にかけて行った症例登録のうち、混合型、もしくは症候群として登録された症例について、統計的な検討を行った。

混合型にはVM, LM, CM, AVMのうち複数の成分を含むが、KTS, PWなど固有の呼称をもつ症候群としての診断にいたらないと登録者が判断した症例が含まれる。

結果の解析においては、混合型、症候群を別に計数した。

1. 川崎医科大学（平成24年9月15日承認）

2. 長崎大学（平成24年10月29日承認）

3. 千葉大学（平成24年11月27日承認）

4. 大阪大学（平成24年2月13日承認）

症例登録データは連結可能匿名化し、照合表は各施設担当者が管理した。公開データに個人情報は含まれない。Web登録システムはISO27001/ISMS認証取得業者に委託した。対象患者の人権は擁護され、不利益並びに危険性は生じないと考えられる。

### C. 研究結果

#### I) 混合型症例

##### (倫理面への配慮)

本調査の実施については研究代表者・研究分担者が所属する以下の研究機関の倫理委

員会の承認が得られている。

患者基本情報

本研究においては、207症例の混合型症例登録があった。年齢は $24.5 \pm 20.5$  (2-88)歳で、男82例、女125例であった。初発時期の記載があったのは191例で、多くが生下時から10歳未満で発症していた。

併存疾患・既往歴があったのは26例であった。先天的素因が強く疑われるものとしてはファロー四徴症、レックリングハウゼン氏病がそれぞれ1例ずつ認められた。家族歴は、なし168例、不明24例で家族歴が指摘された症例はなかった。

#### 部位情報

病変としては232病変についての記載が認められた。主な占拠部位は頭頸部75病変、下肢71病変、体幹46病変、上肢40病変であった。

最深の病変が皮膚皮下までの症例が93例、筋肉骨韌帯まで達するものが114例であった。最大病変が10cm以上の直径を有するものが113例、10cm未満5cm以上であるものが45例、5cm未満であるものが49例であった。

#### 症状情報

受診時の症状としては、整容障害（主観的評価）130例、腫脹116例、疼痛88例、局所の出血（内出血含む）46例、感染13例、潰瘍8例、症状なし9例であった。

機能的障害としては、下肢機能を中心として多彩な障害が認められた。

#### 診断情報

混合型病変を構成する病変としてはVM185例、CM127例、LM114例、AVM25例が指摘されていた。

混合のパターンとしては、VM+CM 69例、VM+LM 68例など、VM+CM+LM29例など、VM、CM、LMを含むパターンが主で、AVMを含むものは少なかった。

診断の根拠としては臨床診断、画像診断が多く用いられており、病理診断の寄与は比較的小さいことがわかった。

診断に有用な画像診断としては、MRI166

例、超音波121例と、診断におけるこれら検査の有用性が高く評価されていた。

#### 治療情報

他院での治療歴がある症例が70例、治療歴のない症例が132例、不明例が5例であった。

治療としては82例で切除（再建）術が、83例で硬化療法が、5例で塞栓療法が、40例でレーザー治療が、保存的治療が51例で行われていた。

総じて122例で入院治療が行われていた。入院治療の回数は1-2回83例、3-5回23例、6回以上15例、回数不明1例であった。

有治療例157例における治療結果は、18例では治癒、111例では改善、2例は悪化、を得ていた。

治療者の判断として、91例は難治性、87例は難治性ではないと判断されていた。

#### 医療費情報

医療費としては10例で自立支援医療、3例で小児慢性医療、1例で東京都特定疾患医療費が用いられていた。25例では不明であったほか、168例では、特別な財源は用いられていなかった。

#### 最大重症度

各症例の重症度は98例が重症度1、55例が重症度2、29例が重症度3、19例が重症度4、6例が重症度5であった。

#### II) 症候群症例

本研究においては、233症例の症候群症例登録があった。年齢は $21.8 \pm 17.9$  (1-75)歳で、男104例、女129例であった。初発時期の記載があったのは213例で、多くが生下時から5歳未満で発症していた。

併存疾患があったのは46例であり、そのうち半数以上が症候群と関連のある先天性の病態であった。

家族歴が指摘されていたのは5例であった。うち2例はBeckwith-wiedemann症候群の症例であり兄弟に同一疾患の患者が指摘されていた。そのほかKTSの1例では親戚にもKTSが指摘されていた。

### 部位情報

病変としてはのべ298病変についての記載が認められた。主な占拠部位は下肢194病変、頭頸部38病変、体幹35病変、上肢31病変であった。

最深の病変が筋肉骨韌帯まで達するものが173例、皮膚皮下までの症例が60例であった。

最大病変が10cm以上の直径を有するものが211例、10cm未満5cm以上であるものが12例、5cm未満であるものが5例、不明であったものが5例であった。

### 症状情報

受診時の症状としては、整容障害（主観的評価）169例、腫脹140例、疼痛97例、局所の出血（内出血含む）57例、潰瘍41例、感染32例、症状なし14例であった。

機能的障害としては、下肢機能を中心として多彩な障害が認められた。

### 診断情報

症候群として登録された症例の診断は、KTS 161例、PW 37例、SW 19例、青色ゴムまり様母斑症候群 6例、Mafucci症候群 6例、Beckwith-wiedemann症候群 2例、Proteus症候群 2例であった。

診断の根拠としては臨床診断の比重が高かった。

診断に有用な画像診断としては、MRI175例、超音波139例と、診断におけるこれら検査の有用性が高く評価されていた。

### 治療情報

他院での治療歴がある症例が104例、治療

歴のない症例が123例、不明例が6例であった。

治療としては 46例で切除（再建）術が、71例で硬化療法が、 15例で塞栓療法が、59例でレーザー治療が、94例で保存的治療が行われていた。

総じて122例で入院治療が行われていた。入院治療の回数は1-2回 45例、3-5回 29例、6回以上 47例、回数不明 1例であった。

有治療例164例における治療結果は、1例で治癒、95例で改善、56例で不変、4例は悪化では悪化していた。

治療者の判断として、182例は難治性、22例は難治性ではないと判断されていた

### 医療費情報

医療費としては22例で自立支援医療、8例で小児慢性医療、1例で東京都特定疾患医療費が用いられていた。51例では不明であったほか、151例では、特別な財源は用いられていなかった。

### 最大重症度

各症例の重症度は53例が重症度1、43例が重症度2、56例が重症度3、52例が重症度4、59例が重症度5であった。

### D. 考察

本研究では、207症例の混合型症例、233症例の症候群症例の登録があった。本邦はもちろんのこと、報告者の認識する範囲で最大数の症例情報を収集した研究となった。脈管奇形の中でも治療の難度が高いと考えられるこれらの病型症例においても、従来より行われている切除術と同等、もしくはそれ以上に高頻度に硬化療法が治療方法として採用されており、高率に病態の改善を得ていたことは、本研究で明らかになった情報の中でも特筆すべき事項である。また、診療者の立場として難治と判断されることの多い幼少の症候群症例においても、その医療費には、多くの場合特別な財源は用いられておらず、かねてより指摘されている、重症脈管奇形患児への社会的支持の

必要性を裏付ける結果となった。

で明らかになった

#### E. 結論

本研究は、本邦はもちろんのこと報告者の認識する範囲で最大数の症例情報を収集した研究となった。脈管奇形の中でも治療の難度が高いと考えられるこれらの病型症例においても、従来より行われている切除術と同等、もしくはそれ以上に高頻度に硬化療法が治療方法として採用されており、高率に病態の改善を得ていたことが本研究

#### G. 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

- 1 特許取得  
該当なし
- 2 実用新案登録  
該当なし
- 3 その他  
該当なし

厚生労働科学研究 難治性疾患等克服研究事業(難治性疾患克服研究事業)  
「難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班 患者実態調査および治療法の研究」  
平成 25 年度 分担研究報告書

診療報酬記録からみた  
血管腫・血管奇形関連患者数の把握の試み

研究分担者 田中 純子  
(広島大学 大学院医歯薬保健学研究院 疫学・疾病制御学 教授)

研究協力者 大久 真幸  
(広島大学 大学院医歯薬保健学研究院 疫学・疾病制御学 研究員)

研究要旨

健康保険組合は全国約 1,500 あり、その対象者数は約 3,000 万人である。そのうち、20 の健康保険組合に属する本人および家族の全診療報酬記録（レセプト）データを解析対象として血管腫・血管奇形関連患者数の把握を試みた。観察期間と対象数は 2009 年（3,743,902 レセプト、818,359 人）、2010 年（5,451,612 レセプト、1,176,754 人）、2011 年（6,056,650 レセプト、1,251,949 人）（対象年齢：0 歳～74 歳）である。

標準病名に【血管腫、リンパ管腫、静脈奇形、母斑、動静脈奇形（AVM）、血管奇形、スター・ウェーバ症候群、クリッペル・トレノネー症候群、クリッペル・トレノーネイ・ウェーバ症候群、先天性動静脈瘤、先天性動静脈瘻】を含むレセプトを抽出した。そのうち 65 歳以上・疑診例・内臓血管性病変・血管性病変以外の母斑・「老人性」等の後天性血管性病変のレセプトを除外した。

個人識別 ID 別、時系列別に詳細に検討し、性別・年齢別に期間有病率を算出した。算出した有病率と日本人口を元に全国推定実患者数を算出した。その結果、2009.1～2011.12 の 3 年期間有病率（2 年以上受診した対象限定）をもとに算出した 64 歳以下の全国推定実患者数は 55,146 人（95%CI：46,403-63,890 人）であり、一方で 3 年期間有病率をもとに算出した 64 歳以下の全国推定実患者数は 209,217 人（95%CI：192,245-226,189 人）であった。このとから、長期的・継続的に受診している患者は多くない事が示唆された。

## A 研究目的

患者数の把握が困難である、血管腫・血管奇形疾患関連患者数を、健康保険組合に加入している本人および家族の全診療報酬記録（以下レセプト）のデータから推計することを試みた。

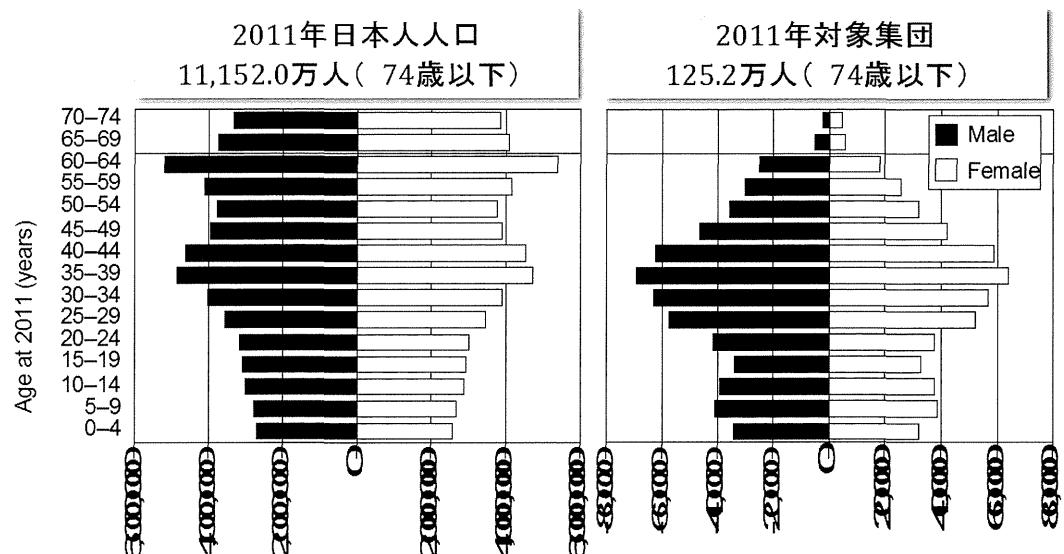
## B 研究方法

### 1) 解析対象

健康保険組合は全国約 1,500 あり、その対象者数は約 3,000 万人である。そのうち、20 の健康保険組合に属する本人および家族の全診療報酬記録を解析対象とした。

観察期間と対象数は 2009 年（3,743,902 レセプト、818,359 人）、2010 年（5,451,612 レセプト、1,176,754 人）、2011 年（6,056,650 レセプト、1,251,949 人）（対象年齢：0 歳～74 歳）である。

解析対象の 2011 における年齢分布を 2011 における日本全体の年齢分布と比較すると、高齢者の割合が低いことがわかる（図 1）。



2) 定義

図 1 2011 年 10 月時の人口ピラミッド（左）2011 年における対象者の数（右）

### ▶ 「特定可」

標準病名から疾患部位が特定できるもの

### ▶ 「特定不可」

標準病名から疾患部位が特定できないもの

### ▶ 「実患者数」

1 疾患 1 患者としてカウントした患者数

### ▶ 「延べ患者数」

1 患者が複数の標準病名を持っている場合の標準病名数の総和

### ▶ 1 年間の全国推定実患者数の推定

1 年間の全国推定実患者数の推定値

$$= 1 \text{ 年期間有病率} * \text{日本人人口}$$

1 年期間有病率\*

= 1 年間の「実患者数」 / 1 年間ににおける健康保険組合加入対象数の月別にみた最大値

### ▶ 2 年間の全国推定実患者数の推定

2 年間の全国推定実患者数の推定値

$$= 2 \text{ 年期間有病率} * \text{日本人人口}$$

2 年期間有病率\*

= 2 年間の「実患者数」 / 2 年間ににおける健康保険組合加入対象数の月別に

みた最大値

▶3 年間の全国推定実患者数の推定

3 年間の全国推定実患者数の推定値

$$= 3 \text{ 年期間有病率} * \text{日本人人口}$$

3 年期間有病率\*

$$= 3 \text{ 年間の「実患者数」} / 3 \text{ 年間ににおける健康保険組合加入対象数の月別にみた最大値}$$

全国推定延べ患者数の推定も同様の定義である。

\*有病率は性・年齢階級別に算出し、日本人人口の乗算も性・年齢階級別に行つた。

3) 解析方法①

(1) 上記対象レセプトの、標準病名が下記のものを含むレセプトを抽出した。

母斑、血管腫、リンパ管腫、静脈奇形、動静脈奇形、血管奇形、先天性動静脈瘻、スタージ・ウェーバ症候群、クリッペル・トレノネー症候群、クリッペル・トレノーネイ・ウェーバ症候群

(2) うち、内臓血管性病変、血管性病変以外の母斑、「老人性」等の後天性血管性病変の標準病名を除外した。

(3) 集計は2通りで行った。すなわち、「実患者数」をカウントする方法と、1患者が複数病名を持っている場合には複数のカウントとする「延べ患者数」の2通りである。

(4) 抽出したレセプトを対象に、さらに詳しい標準病名を元に、疾患の部位が特定できるもの「特定可」、特定できないもの「特定不可」に分類した。「実患者

数」と「延べ患者数」の集計で「特定可」・「特定不可」の判定は異なっており、判定方法はそれぞれ方法②、方法③で記載する。

(5) レセプトより集計した「実患者数」と「延べ患者数」を元に、特定可否別、性別・年齢別（10歳階級）に、それぞれの1年期間有病率、2年期間有病率（2010-2011年）、3年期間有病率（2009-2011年）を算出した。

(6) 全国推定実患者数の算出は、定義に従い、性・年齢階級別の、(5)の期間有病率と人口を用いて推計した。

(7) また、全対象レセプトから、リンパ管腫関連疾患のみを抽出して、同様の集計を行った。

4) 解析方法②：レセプトからの「実患者数」の集計手順及び、全国推定実患者数推計のための詳細手順

(1) 解析方法①(1)で抽出したレセプトを対象に、まず疑診例を除外した。

(2) 患者ID、標準病名、診療年月の順でソートした。

(3) 患者ごとに受診した年を調べた。2009年と2011年に同じ標準病名で受診しているが2010年に受診していない場合は、2010年にも受療があるとみなした。

(4) 年齢は、患者が最初に診療した年月を基準として計算した。翌年以降の年齢は基準年齢に1歳ずつ加算した。診療年月日は年月の情報しか無いため、年齢の換算に用いた日付はすべて15日とした。生年月日は生年情報しかないため、月日はすべて6月30日とした。

- (5)年齢が65歳以上のレセプトを除外とした。
- (6)「特定可」と「特定不可」と判断された標準病名を両方持つ場合は、単年であっても3年間であっても、「特定可」の実患者とみなしてカウントした(図2)。
- (7)患者ごとに、性別・年齢別(10歳階級)・特定可否別の集計を行い、1年期間有病率(2009年、2010年、2011年)、2年期間有病率(2010-2011年)、3年期間有病率(2009-2011年)を算出した。
- (8)2年期間有病率、3年期間有病率を求める際の対象数(分母)には、対象数が最も多い2011年を用いた。
- (9)全国推定実患者数の推定は、定義に従い、期間有病率と人口を用いて推計した。
- (3)それぞれの患者の標準病名ごとに受診した年を調べた。2009年と2011年に同じ標準病名で受診しているが2010年に受診していない場合は、2010年にも診療があるとみなした。
- (4)年齢はそれぞれの患者の疾患ごとに定義し、疾患ごとの最初の診療年月を基準とした。翌年以降の年齢は基準年齢に1歳ずつ加算した。診療年月日は年月の情報しか無いため、日にちはすべて15日とした。生年月日は生年情報しかないとため、月日はすべて6月30日とした。
- (5)年齢が65歳以上を除外とした。
- (6)「特定可」と「特定不可」と判断された標準病名を両方持つ場合は、「特定可」と「特定不可」両方をカウントした(図2)。
- (7)標準病名を性別・年齢別(10歳階級)・特定可否別の集計を行い、1年期間有病率(2009年、2010年、2011年)を算出した。
- (8)全国推定延べ患者数の推定は、定義に従い、期間有病率と人口を用いて推計した。

	2009年の レセプト	2010年の レセプト	2011年の レセプト	分類の判定
患者A	△	△		2009年特定不可 1人 2010年特定不可 1人
患者B		○△		2009年特定可 1人
患者C	○△	○△	△	2009年特定可 1人 2010年特定可 1人 2011年特定可 1人

図2 実患者数集計の場合の特定可・特定不可の分類法

### 5) 解析方法③: レセプトからの「延べ患者数」の集計手順及び、全国推定延べ患者数推計のための詳細手順

- (1)方法①1)で抽出したレセプトを対象に、まず疑診例を除外した。
- (2)患者ID、標準病名、診療年月の優先順位でソートした。

	2009年の レセプト	2010年の レセプト	2011年の レセプト	分類の判定
患者A	△	△		2009年特定不可 1人 2010年特定不可 1人
患者B		○△		2010年特定可 1人 2011年特定不可 1人
患者C	○△	○△	△	2009年特定可 1人 2009年特定不可 1人 2010年特定可 1人 2010年特定不可 1人 2011年特定不可 1人

図3 延べ患者数集計の場合の特定可・特定不可の分類法

本研究において解析対象となる標準病名をAppendixのリスト1(標準病名から疾患部位が特定できるもの)とリスト2(標準病名か

ら疾患部位が特定できないもの)に分類した。また、今回の解析の対象から除外した標準病名をリスト3にまとめた。

### C 結果

#### 1) 解析対象の絞り込み

抽出したレセプトと患者数は2009年(11,818 レセプト、5,133人)、2010年(17,773 レセプト、7,607人)、2011年(19,905 レセプト、8,558人)であった。このうち、疑い診断を含むレセプトを除外し、内臓血管性病変、血管性病変以外の母斑、「老人性」等の後天性血管性病変を除外した。最終的に解析対象は2009年(3,846 レセプト、837人)、2010年(4,310 レセプト、1,323人)、2011年(10,556 レセプト、1,451人)とした(表1)。

#### 2) 血管腫・血管奇形患者の全国推定実患者数と全国推定延べ患者数

算出した有病率を元に日本における64歳以下の全国推定実患者数及び全国推定延べ患者数を表2に示す。また、そ

れぞれの性・年齢階級別、リンパ管種関連疾患の患者数を表2-20に示す。

3年期間有病率(2年以上受診した対象限定)をもとに算出した全国推定実患者数は55,146(95%CI: 46,403-63,890)となつた。

### D. 結論と考察

今回、比較的規模が大きく全国に支店を持つ事業所が加入している健康保険組合の本人および家族の2009-2011年における全レセプトデータをもとにした患者数の推定を試みた。

3年期間有病率(2年以上受診した対象限定)をもとに算出した全国推定実患者数は55,146(95%CI: 46,403-63,890)であり、一方で3年期間有病率をもとに算出した全国推定実患者数は209,217(95%CI: 192,245-226,189)であることから、長期的・継続的に受診している患者は多くない事を示唆している。

### E 研究発表

該当なし

表1 対象の抽出数

	2009		2010		2011	
	No. of Patients	No. of Receipts	No. of Patients	No. of Receipts	No. of Patients	No. of Receipts
Subscriber	818,359	3,743,902	1,176,754	5,451,612	1,251,949	6,056,650
Subscriber Under 65 years	804,993	3,615,585	1,159,104	5,271,076	1,232,588	5,860,799
With angioma or vascular a)	5,133	11,818	7,607	17,773	8,558	19,905
Except for suspected diagnosis b)	4,660	11,096	6,760	16,418	7,534	18,319
Except for target disease c)	837	3,846	1,323	4,310	1,451	10,556

a)標準病名が下記のものを含むレセプトを抽出した。

母斑、血管腫、リンパ管腫、静脈奇形、動静脈奇形、血管奇形、先天性動静脉瘻、スタージ・ウェーバ症候群、クリッペル・トレノネー症候群、クリッペル・トレノーネイ・ウェーバ症候群

b)疑診例を除外。

c)内臓血管性病変、血管性病変以外の母斑、「老人性」等の後天性血管性病変を除外。

F 健康危険情報

該当なし

G 知的財産権の出現・登録状況

該当無し