

## 技術教育セミナー / 四肢軟部血管奇形

め、エタノール注入前後に造影剤を注入するサンドイッチ法が基本になる。水溶性造影剤で80%程度までは希釈できるが、透視下での詳細な観察は難しい。リピオドールを混合する方法もあるが、オイルが静脈に流出するため好ましいとはいえない。

血管を即時的に閉塞させるNBCAとは異なり、エタノールの作用には時間がかかる。5~10分間隔でボーラス注入を反復し、次第に血栓化や血流が低下する様子をその都度造影で確かめる。血流低下に伴い、追加するボーラス注入量も減らす(図1)。超音波では、血栓化が進むにつれて、Bモードで徐々に血管内に点状高輝度が観察される。

エタノールは、血管腔の血液を押しやり血管内皮への接触を高めるよう、ある程度の力で圧入する必要があるが、あくまで正常動脈枝への溢流は回避する。

エタノールの過量投与は、中毒症や心肺虚脱の危険があり、使用量は制限される。肝癌用の無水エタノール製剤(フソー)の添付文書は、1日投与量が原則最大10mLとしている。AVMに対する治療では、文献上0.5~1.0mL/kgが上限とされている。総量だけでなく、1回毎のボーラス注入量も重要で、Mitchellらはボーラス注入当たり最大0.1mL/kgとし、5分以上の注入間隔を推奨している<sup>2)</sup>。Shinらは、Swan-Ganz・カテーテルを用いた検証から、ボーラス注入量が0.14mL/kgを超えると有意に右心負荷が増して危険としている<sup>4)</sup>。小児における至適量は十分検討されておらず、重症低血糖を認めた報告もあり、注意を要する<sup>5)</sup>。従って、大きい病変では、一度に無理せず治療を分割・反復する方がよい。

以下、投与経路別に技術的な注意点について述べる。

## 1) 経動脈的アプローチ(図1)

可能な限りnidus直前までカテーテルの超選択挿入に努める。流入動脈の本数が多く、屈曲・蛇行が強い場合は限界があり、手技・透視時間も長引きやすい。妥協して正常動脈枝より手前からエタノールを注入すると周囲組織の虚血障害の恐れがある。カテーテル操作によるウェッジやスパスマ惹起は、血行動態を変えるが、意図せず好都合な血流コントロールにもなり得る。

## 2) 経静脈的アプローチ

多数の流入動脈が1本の流出静脈(dominant outflow vein)に抜ける場合に有用である。流出静脈までカテーテルを逆行性に挿入し、バルーン閉塞やターニケット駆血を併用する。バルーン閉塞下では、B-RTOの要領になるが、動脈圧がかかり続けると潰瘍など脆弱な組織では出血させる恐れがある。従って、ターニケットを動脈圧以上に加圧したり、動脈側もバルーン閉塞して、動脈圧を下げておくことも考慮される。流出静脈腔が広すぎる場合は、そのままエタノールを注入しても十分な塞栓効果は望めないので、先にコイルを用いて静脈側のcavityを極力減らすとよい。その際、コイルの逸脱の回避が重要である。引き続き、エタノールを注入する場合、正常動脈まで逆流させ過ぎないように加減する。あるいは、エタノール注入を動脈側からに切り替えてよい。

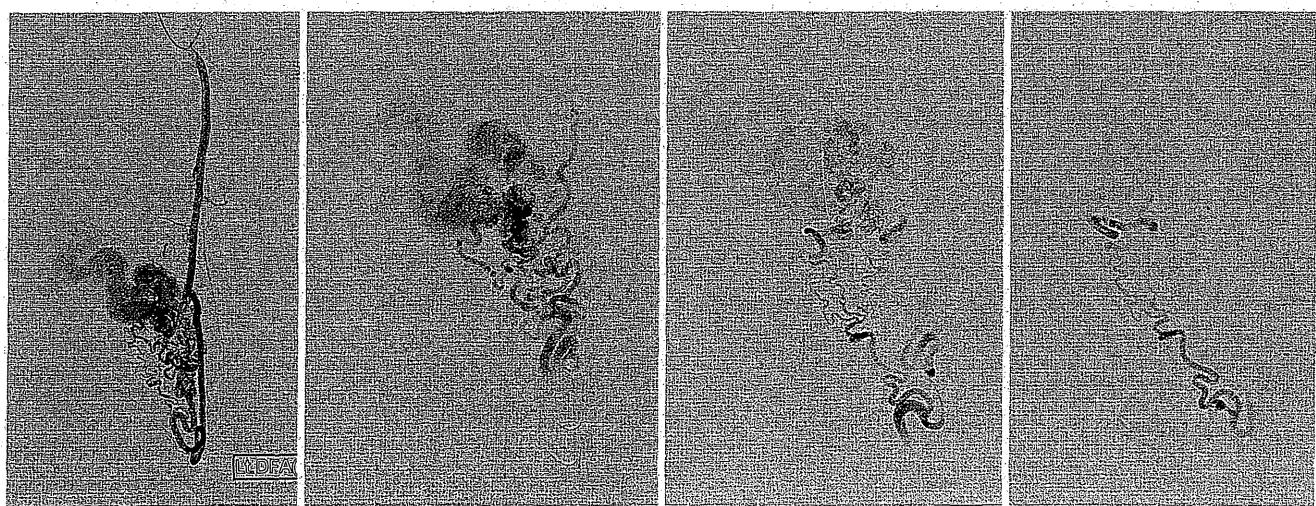


図1 10代女性。左大腿AVMに対する経動脈的塞栓術。

a: 左深大腿動脈造影。正常な筋肉枝を分岐後、末梢で動静脈短絡(nidus)を形成している。

b: Nidus直前までマイクロカテーテルを選択挿入し、ターニケット駆血下に造影剤約1mLで造影。屈曲蛇行する複数の流入動脈から拡張した流出静脈に移行する。近位側の正常筋肉枝に逆流しないことを確認し、エタノール1mLを注入。

c: 5分後の造影。Nidusは減弱している。エタノール0.5mLを追加注入。

d: 15分後の造影。Nidusはほぼ閉塞した。

## 技術教育セミナー / 四肢軟部血管奇形

## 3) 直接穿刺アプローチ(図2)

経動脈や経静脈アプローチが困難な場合に有用である。超音波下あるいはロードマップ透視下にnidusを穿刺し、ヒットした部位が、nidusの動脈成分側か静脈成分側かを造影で見極める。バルーンやターニケットで血流コントロールしながら、nidusにうまく停留し、正常動脈まで溢れないようエタノールを注入する。穿刺針は、浅い病変には、翼を鋏で切った23～25G翼状針(約1.5cm長)がちょうどよい。翼を切る理由は、せっかくヒットした針が翼の重さで傾いて抜けたり、穿刺を追加する際に翼同士が干渉するからである。翼状針で届かない深さでは、23G注射針(約3cm長)、さらに深い部位には23Gカテラン針(約6cm長)、22Gスパイ

ナル針(約9cm長)などを用意する。翼状針以外では、デッドスペースの小さい(0.4ml)延長チューブと接続する。逆血の確認は重要だが、針内に残った血液とエタノールが接触するとsludgeを作り針が詰まってしまう。シリジンを交換する際に、血液が針内に逆流しやすいため、シリジンの繋ぎ替えは、鉗子で延長チューブを先にクランプしてから行うとよい。針が標的にヒットしなかったり、ヒットしてもエタノール注入に不適切な場合は、抜針せずにそのまま置いておく。その理由は、針を抜いてしまうと出血して圧迫止血に時間を取られたり、次の穿刺部位を決めるのに残した針の位置や角度が目安になるからである。従って、実際にエタノールを注入した針よりもしばしば多い数の針

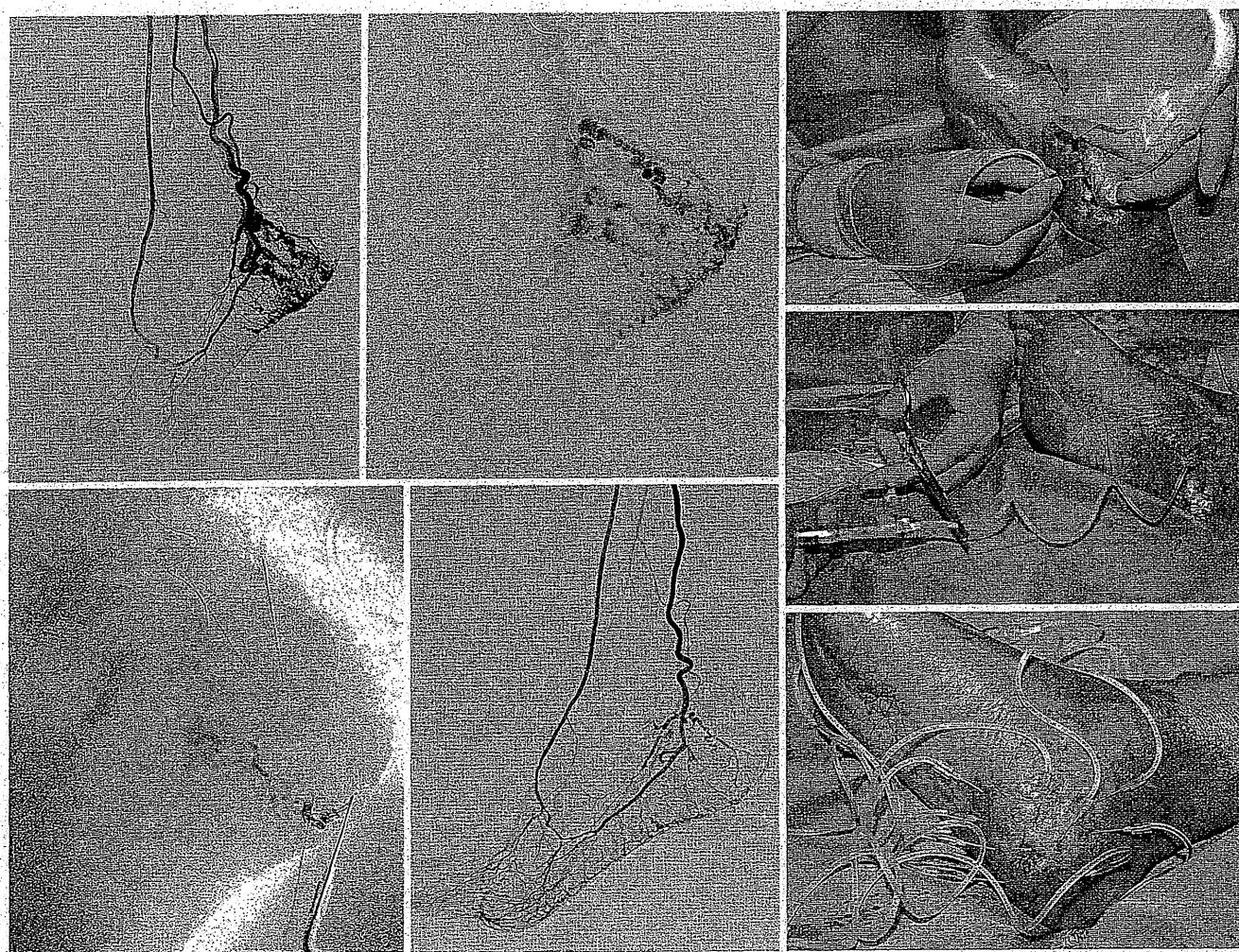


図2 50代女性。左足AVM。主訴は難治性潰瘍と疼痛。

- a: 跖部足底に微細なnidusを認める。
- b: 経動脈的塞栓術を試みるも、nidus直前への十分な選択挿入は困難で、足底動脈への溢流が危惧された。
- c: 直接穿刺造影。異常血管が描出される。ターニケット駆血下に無水エタノールを0.5ml注入。
- d: 2回目の治療終了時のDSA。Nidusはほぼ消失している。
- e: 超音波下に25G翼状針(翼はカット)で皮下の異常血管を穿刺する様子。
- f: エタノール注入終了時に針先に血液が返らないようクランプする様子。
- g: 治療終了時の穿刺針の様子。

a	b	e
c	d	f
		g

## 技術教育セミナー / 四肢軟部血管奇形

が穿刺される。超音波で観察できる場合は、カラーモードでシャント波形を示す血流が残る部分に対して追加の穿刺を行う。

### 術中管理

術前から十分な補液を行い、腎血流・尿量を確保する。水分バランスのモニターとヘモグロビン尿のチェックを兼ねて尿道カテーテルを留置する。術中は、心電図、血中酸素飽和度、終末呼気二酸化炭素濃度などのモニタリングが必要である。エタノール投与量が0.5 mL/kg以上に達すると肺高血圧や心肺虚脱のリスクも高まるため、ニトログリセリン持続投与、Swan-Ganzカテーテル・動脈ライン・経食道エコーや集中回復室などの準備が必要となる<sup>4)</sup>。急激な肺血圧上昇の際は、純酸素投与・血栓溶解・抗凝固療法なども開始する。治療中は、皮膚障害や末梢循環不全が起こっていないか、患部周囲の色調変化や過度の腫脹など視・触診を行う。

### 術後管理

急性炎症による患部の疼痛・腫脹は、術直後から約1~2週間は持続する。当日から翌日は、鎮痛剤・ステロイド・抗生物質などの投与を基本とし、必要に応じて皮膚保護、患肢挙上を行う。溶血、肝・腎機能障害、横紋筋融解、炎症反応など、血液・生化学・凝固線溶・検尿などのチェックを適宜行う。肉眼的にヘモグロビン尿を認めた場合は重炭酸ナトリウム投与による尿のアルカリ化(ヘモグロビン成分のヘマチン沈着による尿細管閉塞を予防)やハプトグロビン点滴静注を行う。ハプトグロビンは生物由来製剤であり、予防投与は控えるべきである。

### 合併症

エタノールの血管外漏出や正常終末動脈枝への溢流により、皮膚壊死、筋肉障害、神經障害などが起こり得る。筋肉の術後腫脹が過度になるとコンパートメント症候群を起こす危険もある。筋肉内病変では、瘢痕・拘縮による機能障害を来す恐れもあり、急性期が過ぎたら、ストレッチングやリハビリに努める。神經障害は、多くは一過性の知覚麻痺で、ある程度強い障害では、運動麻痺が長引く恐れがある。流出路の血栓化や患部の腫脹圧迫に伴い深部靜脈血栓症のリスクもある。高濃度・大量のエタノール、または多量の血栓流出による肺高血圧症や肺塞栓症は、致死的になり得る。

### 文献上の成績

四肢軟部のAVMに対するエタノール塞栓術の報告は、多くが症例報告や総説で、まとめた成績は少ない。Doらは、四肢・体幹AVM 40例に対して1~24回(中央値3回)計175回のエタノール塞栓術を行い、平均

14.6ヵ月(2~48ヵ月)の観察期間中、27例(68%)で症状改善が得られ、16例(40%)で治癒したとしている<sup>6)</sup>。しかし、皮膚壊死・神經麻痺・感染・急性腎不全を含む合併症を21例(52%)に認めたとしている。Parkらは手AVM 31例に対して、1~11回(平均2.8回)のエタノール塞栓術を行い、1例(3%)で根治、22例(78%)で改善、7例(23%)は不变としている。一方、19例(61%)に合併症を認め、内訳は、皮膚壊死14例(45%)、水泡7例(23%)、関節拘縮6例(19%)、一過性麻痺4例(13%)で、2例は切断を要したとしている<sup>7)</sup>。いずれも同じ施設からの報告だが有効性が高いと同時に合併症率も高いことが共通している。

### まとめ

AVMに対する血管内治療は、施行施設が一部の専門施設に集中する傾向があり、その有効性について高いエビデンスはないのが現状である。特に、エタノール塞栓療法は、優れた効果を示す一方、全身麻酔を必要とし、局所壊死・麻痺から致死的合併症までリスクの高い治療である。従って、他の塞栓物質や治療法とのリスク・ベネフィットを熟慮した上で、エタノール塞栓療法の適応を慎重に判断し、合併症管理も含めて集学的な専門チームにより行われるべきである。

### 【参考文献】

- Yakes WF, Rossi P, Odink H: How I do it. Arteriovenous malformation management. Cardiovasc Interv Radiol 19: 65-71, 1996.
- Mitchell SE, Shah AM, Schwengel D: Pulmonary artery pressure changes during ethanol embolization procedures to treat vascular malformations: can cardiovascular collapse be predicted? J Vasc Interv Radiol 17: 253-262, 2006.
- Ellman BA, Parkhill BJ, Curry TS 3rd, et al: Ablation of renal tumors with absolute ethanol: a new technique. Radiology 198; 141: 619-626.
- Shin BS, Do YS, Cho HS, et al: Effects of repeat bolus ethanol injections on cardiopulmonary hemodynamic changes during embolotherapy of arteriovenous malformations of the extremities. J Vasc Interv Radiol 21: 81-89, 2010.
- Joffe D, Bank WO: Morbidity in a pediatric patient having alcohol ablation of an arteriovenous malformation. Can J Anaesth 53: 527-528, 2006.
- Do YS, Yakes WF, Shin SW, et al: Ethanol embolization of arteriovenous malformations: interim results. Radiology 235: 674-682, 2005.
- Park HS, Do YS, Park KB, et al: Ethanol embolotherapy of hand arteriovenous malformations. J Vasc Surg 53: 725-731, 2011.

## 四肢と肩甲骨部の動脈奇形に対して 血管内治療が奏効した2例

野村 元成<sup>1</sup>, 上原秀一郎<sup>1</sup>, 大須賀慶悟<sup>2</sup>,  
東原 大樹<sup>2</sup>, 大植 孝治<sup>1</sup>, 福澤 正洋<sup>1</sup>

### 要　旨

我々は四肢と肩甲骨部の動脈奇形（AVM）に対して血管内治療が有効であった2例を経験したので報告する。〈症例1〉15歳男児、13歳頃より運動時の右肩の疼痛を自覚し、徐々に右上肢挙上が困難になった。症状増悪のため14歳で前医を受診し、造影CTにて血管性病変を指摘されて当院紹介受診となった。血管造影にて右肩甲骨付近にnidusを認めたためAVMと診断し、計3回のTAEを行った。症状は若干軽快している。〈症例2〉15歳女児、3歳頃より左大腿後面に腫脹を認めるも症状なく経過。11歳時に疼痛を認め、前医での画像検査にてAVMを疑われ当院紹介受診となり、TAEや無水エタノールによる硬化療法など計3回の血管内治療を行った。症状も軽快し画像上もnidusは著明に縮小している。AVMの治療目標として症状改善が重要であり、特に小児では低侵襲で複数回治療可能なTAEや硬化療法のような血管内治療が有効と考えられた。

索引用語：動脈奇形（AVM）、動脈塞栓術（TAE）、硬化療法、血管内治療

### I はじめに

動脈奇形は毛細血管を介さない動脈の吻合異常であり、Schöbinger分類<sup>1)</sup>による臨床病期のうち、III期、IV期は特に症状が強く治療を要する。治療法としては外科手術以外に、動脈短絡路であるnidusの閉鎖を標的とするコイルや塞栓物質を用いた動脈塞栓術（TAE）などがある。我々は、2004年2月から2009年7月までに当施設で治療したAVMのうち、無水エタノールや他の塞栓物質を併用した血管内治療が奏効した2例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

### II 症　　例

#### 症例1：15歳男児

主訴：運動時の右肩疼痛、右上肢挙上困難。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：2007年春頃より右上肢を挙上した際に右肩の疼痛を自覚し、その後、徐々に右上肢挙上が困難に

なった。2008年6月、バレーボール中に右肩の激痛を自覚し整形外科を受診した。造影CTにて血管性病変を疑われ、2008年8月に当院紹介受診となった。

入院時現症：心雜音や肺雜音を聴取せず。右肩関節周囲に明らかな腫瘍を触知しないが、右肩甲骨を中心には拍動を触知した。

画像所見：血管造影にて肩甲骨付近に蛇行、拡張した巨大なnidusを認め、その末梢の上腕動脈が狭小化していた（図1A）。

治療経過：外科的手術は機能面から不可能と判断し、2009年3月、nidusへの血流供給が最も豊富な右内胸動脈枝を標的的に治療を開始した。血流が速く無水エタノールがほとんど流れてしまうため、superabsorbent polymer microsphere (SAP-MS) を用いたTAEにて血流を減弱させ、引き続いて経カテーテル的に無水エタノールを用いたTAEを行った。鎖骨下動脈造影にてnidusの血流が減弱したことを確認して終了した（図1B）。同年6月、右背側肩峰動脈を標的として1回目と同様にSAP-MSと無水エタノールを併用したTAEを施行した（図1C）。同年8月、右上腕回旋動脈、右肩甲下動脈を標的としたが、血管の拡張が著明でSAP-MSによる塞栓効果は望めないと判断して無水エタノールを用いたTAEのみを施

<sup>1</sup>大阪大学大学院医学系研究科小児成育外科学

<sup>2</sup>同 放射線診断学

代表者連絡先：野村元成 〒565-0871 大阪府吹田市山田丘2-2  
大阪大学大学院医学系研究科小児成育外科学

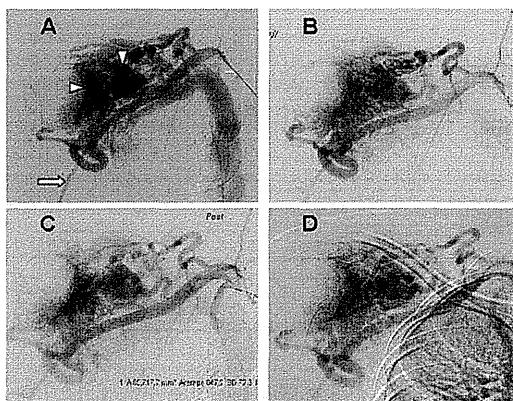


図1 症例1 右肩動脈奇形

A. 治療前の血管造影、右肩甲骨付近に蛇行、拡張した巨大な nidus を認め（矢頭）、その末梢の上腕動脈が狭小化している（矢印）。

B. 1回目の血管塞栓術直後。治療前よりシャントの血流は減少している。

C. 2回目の血管塞栓術直後。1回目よりややシャント血流が減少している。

D. 3回目のTAE（エタノール注入のみ）直後。2回目と比較して著変なし。症状は改善した。

行した（図1D）。計3回のTAEを施行したが、治療前と比較するとnidusの血流は減弱しており、右肩の疼痛や上肢挙上困難も改善傾向にある。

症例2：15歳女児。

主訴：左大腿後面の有痛性腫脹。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：1998年頃より左大腿後面に膨隆を認めるも症状なく経過していた。2007年1月、左大腿後面の軽度の疼痛を伴うようになったため前医を受診し、MRI、エコーにてAVMが疑われたため、同年2月に当院紹介受診となった。

入院時現症：左大腿後面に拍動・熱感・硬結を伴う膨隆を認める。

画像所見：血管造影にて左深大腿動脈各枝にシャントを認める（図2A,B）。

治療経過：2007年8月、1回目の経皮的塞栓術を施行した。仰臥位にて右大腿動脈よりカテーテルを挿入し、nidusに流入する左深大腿動脈の枝を標的にSAP-MSおよびn-butyl 2-cyanoacrylate (NBCA)を使用してTAEを施行した。その後、腹臥位にてエコーガイド下に流出静脈に経皮的穿刺をして無水エタノールによる硬化療法を施行し、仰臥位に戻して血管造影にてnidusの縮小を確認した。しかし同年10月、MRIにてnidusのサイ

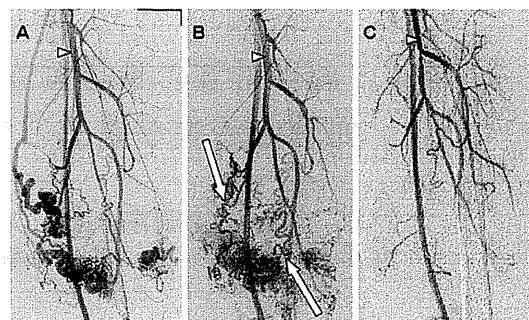


図2 症例2 左大腿動脈奇形

A. 診断時の血管造影。

B. 治療前の血管造影。深大腿動脈（矢頭）各枝に動脈シャント（矢印）を認める。

C. 3回の血管内治療後。大部分の動脈シャントが消失した。

ズは治療前と同程度で、再開通したものと判断した。2009年8月、2回目の治療として、無水エタノールを用いたTAEおよびNBCAを用いた経皮的塞栓術を施行した。同年12月、MRIにてnidusの縮小を確認してから、3回目の治療としてNBCAを用いた経皮的塞栓術を施行した。計3回の血管内治療の施行後、nidusも消失し（図2C）、治療前と比較して左大腿後面の膨隆も症状も改善している。

### III 考 察

2000年から2009年の間に血管腫として当施設に紹介された小児の初診患者140例（平均7.1歳、男：女=57：83）のうち、血管腫瘍13例（9%）、血管奇形109例（78%）、分類不能18例（9%）であった。血管奇形のうち、VM 70例、AVM 10例、その他29例であった<sup>2)</sup>。当施設では、International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) が1996年に血管性腫瘍と血管奇形に大別したISSVA分類<sup>3)</sup>（表1）に準じて的確な診断に努めている。AVMはしばしば血管腫として診断されることがあるが、血管腫とAVMは発生学的、病理学的にも性質を異にする。血管腫は血管内皮細胞の腫瘍性増殖を本態とする良性腫瘍であるのに対して、AVMは増殖性変化を伴わない先天性血管奇形であり、胎児期の原始動脈網の退縮不全に起因する遺残を本態とする。この遺残したnidusにより、流入および流出血管の拡張・蛇行・瘤化等を来たす<sup>1)</sup>。

AVMの臨床病期はSchöbinger分類によって、I期：皮膚紅潮・温感、II期：雜音聴取・拍動性腫脹・膨隆、III期：疼痛・潰瘍・出血・感染、IV期：高拍出性心不

表1 ISSVA分類(抜粋)

Vascular tumors	Vascular malformation
<ul style="list-style-type: none"> <li>· Infantile hemangioma</li> <li>· Congenital hemangioma (RICH/NICH)</li> <li>· Tufted angioma</li> <li>· Kaposiform hemangioendothelioma</li> <li>· Spindle cell hemangioendothelioma</li> <li>· Other, rare hemangioendotheliomas</li> <li>· Dermatologic acquired vascular tumors</li> </ul>	<p><u>Slow-flow vascular malformations</u></p> <ul style="list-style-type: none"> <li>· Capillary malformation (CM)</li> <li>· Venous malformation (VM)</li> <li>· Lymphatic malformation (LM)</li> </ul> <p><u>Fast-flow vascular malformations</u></p> <ul style="list-style-type: none"> <li>· Arterial malformation (AM)</li> <li>· Arteriovenous fistula (AVF)</li> <li>· Arteriovenous malformation (AVM)</li> </ul> <p><u>Complex-combined vascular malformations</u></p> <ul style="list-style-type: none"> <li>· CVM, CLM, LVM, CLVM, AVM-LM, CM-AVM</li> </ul>

全と規定されており、特にIII期、IV期の症例はQOLの改善もしくは救命のために可及的速やかな治療の開始が望まれる。AVMに対する血管内治療の標的は動静脈短絡路の閉鎖に集約されるが、多期的な治療になることが多い。よってコイルを用いた流入動脈近位の塞栓は側副路の発生を惹起し、以後の治療を困難にすることが多い。従って、当施設では経カテーテル的もしくは直接穿刺にて塞栓物質などを注入して短絡路の閉鎖を図っている<sup>2)</sup>。しかし塞栓物質は1回の治療で使用できる量に上限があるため、術中血管造影による動静脈の解剖学的特徴の正確な把握をした上で、これらの物質を有効に併用して最大限の効果を得られるように努める必要がある。また、SAP-MSやNBCAなどの塞栓物質の溢流・迷入による局所の虚血障害や肺塞栓、または無水エタノールによる循環動態への影響や腎障害のリスクも十分に考慮した上で治療に当たる必要がある<sup>4,5)</sup>。よって当施設では、血管内治療後は最低でも3日間の入院観察期間をおいて全身状態の管理をしている。なお、本稿の2症例に使用した塞栓物質は保険適応外の物質も含まれているが、保険適応外であることはもちろん、見込まれる治療効果および副作用に関して患者とその家族に治療前に十分に説明をして理解を得た上で同意を得ている。

症例1は症状の改善を少しづつながら認めているため、しばらくはTAEを中心とした血管内治療を継続していく予定だが、数回の血管内治療にも関わらず、nidusは依然として残存しており、いずれは外科的切除を考慮する可能性がある。しかし、外科的切除が必要となる場合も、事前の血管塞栓術は術中の出血コントロールに有効であるという報告もなされており<sup>6)</sup>、TAEは今後も治療の中心的役割の一つを担っていくものと考える。特にSAP-MSを用いたTAEは血流の豊富なAVMに対して是有効である<sup>7)</sup>。しかし、血管内治療による症状緩和や

nidusの縮小は得られても、根治と断定できる症例は極めて少ない。しかも、治療後に新たな側副血行路が発生することも少なくない。また、客観的に評価できる治療効果の判定基準も明確でなく、症例によって臨床像も多彩であるため、均一化された治療目標の設定が困難である。よって、治療後も定期的な外来受診による経過観察が不可欠と考えられた。

また、当院においては、このような症例に対するより質の高い治療を目指すべく、定期的に関連科との合同カンファレンスを行っている。我々、小児外科医の立場としては、患児の全身状態の異常に早急に対応できるよう周術期管理を行うのみならず、血管内治療を直接的に行う放射線科医、四肢機能面の評価を行う整形外科医など他科との密な連携を取るように心がけ、外来、入院を通して治療計画の中心的役割を担うところにも大きな重要性を持つものと考えられた。

#### 申告すべき利益相反状態はない。

(なお、本論文の主旨は、第62回小児外科わからん会（2009年10月10日、大阪）において発表した。)

#### 文 献

- ) Kohout MP, Hansen M, Pribaz JJ, et al: Arteriovenous malformations of the head and neck: Natural history and management. Plast Reconstr Surg, 102: 643-654, 1998.
- ) 大須賀慶悟、上原秀一郎、波多祐紀、他：血管腫・血管奇形のISSVA分類と血管内治療。小児外科, 42: 644-648, 2010.
- ) Enjolras O, Wassef M, Chapot R: Introduction: ISSVA classification. Color Atlas of Vascular Tumors

- and Vascular Malformations. pp 3-11, Cambridge University Press, New York, 2007.
- ) White RI, Pollak J, Persing J, et al: Long-term outcome of embolotherapy and surgery for high-flow extremity arteriovenous malformations. *J Vasc Interv Radiol*, 11: 1285-1295, 2000.
  - ) Do YS, Park KB, Cho SK: How do we treat arteriovenous malformations (tips and tricks)? *Tech Vasc Interv Radiol*, 10: 291-298, 2007.
  - ) Dickey KW, Pollak JS, Meier GH 3rd, et al:

Management of large high-flow arteriovenous malformations of the shoulder and upper extremity with transcatheter embolotherapy. *J Vasc Interv Radiol*, 6: 765-773, 1995.

· ) Osuga K, Hori S, Kitayoshi H, et al: Embolization of high flow arteriovenous malformations: Experience with use of superabsorbent polymer microspheres. *J Vasc Interv Radiol*, 13: 1125-1133, 2002.

(2012年8月3日受付)

(2012年12月3日採用)

### Case Report:

#### Effective Intravascular Therapy for Arteriovenous Malformations of Extremity and Shoulder

Motonari Nomura<sup>1</sup>, Shuichiro Uehara<sup>1</sup>, Keigo Osuga<sup>2</sup>,  
Hiroki Higashihara<sup>2</sup>, Takaharu Oue<sup>1</sup>, and Masahiro Fukuzawa<sup>1</sup>

<sup>1</sup> Department of Pediatric Surgery, Osaka University

<sup>2</sup> Department of Diagnostic Radiology, Osaka University

We report two cases of arteriovenous malformations (AVM) of extremity and shoulder for which intravascular therapy was effective.

Case 1: A 15-year-old boy presenting shoulder pain. When he was 13 years old, he felt radical shoulder pain with movement of the right upper extremity which eventually led to difficulty in raising the affected extremity. When he was 14 years old, the progressive symptoms were diagnosed as vascular lesions by contrast-enhanced computed tomography scanning, and he was then referred to our hospital. He was diagnosed with AVM because of the existence

of a nidus around the right shoulder blade. The symptoms were improved after transarterial embolization (TAE) was repeated for three times.

Case 2: A 15-year-old girl presenting femur pain. When she was 3 years old, swelling at the back of the femur was noted. When she was 11 years old, she felt pain of the affected site for the first time. She was diagnosed as having AVM, and was referred to our hospital. We performed intravascular therapy involving vascular embolization or sclerotherapy for three times, and the symptoms improved with the nidus reduced significantly.

Improvement of symptoms is a very important outcome of the AVM therapy. Since intravascular therapy involving TAE or sclerotherapy is minimally invasive and can be performed repeatedly, its application for the improvement of AVM, especially in children, is emphasized in this study.

---

Key words: arteriovenous malformation (AVM), transarterial embolization (TAE), sclerotherapy, intravascular therapy  
Correspondence to: Motonari Nomura, Department of Pediatric Surgery, Osaka University, 2-2, Yamadaoka, Suita-shi, Osaka, 565-0871 JAPAN

