

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より 静脈奇形に関する解析

研究分担者 大須賀慶悟 大阪大学大学院医学系研究科放射線医学講座 講師

研究要旨：

血管腫・血管奇形の全国調査で登録された静脈奇形2217例に関する解析を行った。性別は女性(62%)に多く、60%が生下時～10歳未満で発症した。約1%に家族性が見られた。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、様々な機能障害も認められた。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、硬化療法が1024例(46%)、切除が556例(25%)に行われた。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。重症度4あるいは5の重症例は3%と少数である一方、難治性と判断された症例は23%にのぼり、両者の頻度に乖離が見られた要因については今後の課題である。

A．研究目的

本邦では過去に静脈奇形の体系的調査がなく、患者数や実態が把握できていないため、治療法の保険認可や難治性疾患としての施策を施行する上で問題となっている。そこで、本研究班で実施された全国規模の血管腫・血管奇形の実態調査を基に、静脈奇形に関する疫学や症状・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

1．全国疫学調査と重症度分類の完成・検証

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、静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

1. 患者基本情報

登録された静脈奇形は2217例で、性別は、女性1374例(62%)、男性843例(38%)、年齢は、平均31歳(1～99歳)であった。発症時期(登録1853例)は、512例(28%)が生下時に、602

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%)、不変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