

特集

ISSUE

血管腫・血管奇形の治療戦略

# 海綿状血管腫 (venous malformation) に対する硬化療法

佐々木 了\*

KEY WORDS ▶ 海綿状血管腫 静脈奇形 硬化療法

## はじめに

国際血管腫血管奇形学会 (the International Society for the Study of Vascular Anomalies: ISSVA) では血管性腫瘍と血管奇形を明確に区別した ISSVA 分類を提唱し、莓状血管腫 [ISSVA 分類での乳児血管腫 (infantile hemangioma: 以下, IH)] に代表される血管性腫瘍 (vascular tumor) と、脈管形成異常としての血管奇形 (vascular malformation) を区分している<sup>1)</sup>。本稿では、血管奇形の中で従来「海綿状血管腫」と称されていた静脈奇形 (venous malformation: 以下, VM) に対する硬化療法の適応、治療開始時期、治療の実際と留意点、合併症、などを概説する。

## ■ VM の特徴

VM の多くは生下時から認められるが、経年的に腫瘤が増大するため、深部病変では成人してから発症することもある。表在性病変

と皮下腫瘤の両方を有するタイプの IH を「莓状血管腫と海綿状血管腫の混合型」と表現し、2つの別の腫瘍の合併であるかのような記述のある報告や教科書が従来あったが、この皮下腫瘤は表在病変から連続する IH そのものであり、VM ではないことに注意すべきである。

IH と異なり VM の病変内血流速度は遅く、安静状態ではカラードップラーエコーにて血流を確認できない場合があるが、圧迫操作などで内部血液の動きを観察できる。血流停滞の著しい VM では、内部血栓が石灰化し静脈石が多発することがある。症状は変形、変色、出血、感染、組織肥大など多岐にわたるが、特に疼痛を主訴とすることが多い。疼痛の原因は特定されていないが、血液うっ滞による血管拡張刺激や、静脈石の刺激、炎症、知覚神経への圧迫などが考えられる。巨大 VM や全身多発性 VM では、病変内で血液凝固が進行しフィブリンノーゲンなどが大量に消費されて localized intravascular coagulopathy (LIC) と呼ばれる病態を呈することが多くあり<sup>2)</sup>。慢性消費性血液凝固障害 (consumption coagulopathy) とも称される。血管奇形の部位以外の外傷や病変切除においても止血困難を来すことがあるため、安易な外科的侵襲は慎まなければならない。なお、

\* 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

表1 硬化剤の特徴

	Et	EO	Po
性質		界面活性剤	界面活性剤
フォーム硬化療法	不可	可能	可能
作用	細胞固定・脱落	細胞膜溶解	細胞膜溶解
硬化強度	(+++)	(++)	(+)
		フォームで効果 up	フォームで効果 up
即効性	(+++)	(++)	(+)
蛋白凝固作用	(+++)	(++)	(+)
注入時疼痛	(+++)	(+) ~ (++)	(-) ~ (+)
術後腫脹	(+)	(++)	(++)
皮膚・神経などの組織障害	(+++)	(++)	(+)
溶血性ヘモグロビン尿	(+++)	(+++)	(+)
心筋抑制作用	?	?	(+)
肺高血圧・肺塞栓のリスク	(+)	(+)	?
1日上限投与量	0.5 ml/kg	5%で20 ml/body(成人)	2 mg/kg

Et: ethanol, EO: ethanolamine oleate, Po: polidocanol

房状血管腫 (tufted angioma) やカボジ肉腫様血管内皮腫 (kaposiform hemangioendothelioma) など特殊な血管性腫瘍での血小板捕捉・破壊から生じる Kasabach-Merritt 現象と LIC は異なる病態とされている。Kasabach-Merritt 現象では発症初期から血小板が低下するのに対して、LIC ではフィブリノーゲン低下、FDP および D ダイマーの上昇などを主とし、軽症では血小板低下を来さない。

## II 硬化剤の特徴と選択

VM に対して用いられている硬化剤としては、エタノール (ethanol: Et, 商品名: 無水エタノール), ポリドカノール (polidocanol: Po, 商品名: ポリドカスクレロール), モノエタノールアミンオレイン酸塩 (ethanolamine oleate: EO, 商品名: オルダミン), sodium tetradecyl sulfate (STS) などがある。ここでは、わが国でほとんど使用されていない STS を除く 3 剤について述べる (表 1)。

作用機序は、Et は細胞の固定・脱落作用が主体で、Po と EO とが界面活性剤に属し、膜溶解作用にて細胞を破壊することにより、

細胞障害と血栓形成により収縮閉塞を起こす。最も効果が強く即効性があるのは Et で、強い蛋白凝固作用を有する。Po は効果が比較的弱く遅効性である。EO は効果・即効性ともに両者の中間に位置する。

近年では、Po や EO を炭酸ガスや空気と混和し、フォームとして用いることが多くなっている<sup>3)~6)</sup>。フォームにした際に治療効果や速効性が向上し、無水エタノールに遜色ないとする報告がある<sup>5)6)</sup>。

注入時疼痛は Et, EO, Po の順であり、Et では全身麻酔などによる除痛が必須となる。Po はほとんど疼痛がないため小児でも無麻酔で使用可能である。Et と EO では皮内や皮膚直下に注入した際に皮膚壊死が多く見られるが、Po では少ない。溶血性ヘモグロビン尿は Et, EO, Po すべてで起こり得る。Po は心筋抑制作用を有し、大量使用で心停止の危険性がある。Et では血管以外への障害作用も強く、神経が隣接する場合などは麻痺を起こすことがある。硬化剤の大量投与では肺高血圧症や肺塞栓症も起こり得る。

1日の治療における上限投与量は、Et で 0.5 ~ 1.0 ml/kg, Po は 2 mg/kg, EO は成人で 5 %

表2 静脈奇形の切除と硬化療法の比較

	切除	硬化療法
皮膚癬痕 手術回数	あり 限局性であれば1回(癬痕修正は含まず)	なし(皮膚壊死のリスクあり) 1回~多数回
浸潤性 VM ・例:皮膚浸潤 ・例:神経近傍 高度 LIC を伴う VM 巨大 VM に対する一期的治療	完全切除には正常組織の合併切除を要する 皮弁や植皮を要することがある 神経損傷:永久的な場合が多い 術中術後の出血リスクが大きい 遊離皮弁などを用いれば可能な場合あり	正常組織損傷が少なく治療可能 ・皮膚を残して治療可能 ・神経損傷:一過性のことが多い 出血リスク少なく治療可能 硬化剤の上限量を超えるため完全消失は困難
巨大 VM に対する連続治療	部分切除では出血と再増大のリスクが大きい	可能だが治療間隔が大きいと再増大の可能性あり
眼窩球後部 VM	侵襲は大きい切除または減量可能な場合あり	視機能障害のリスク大
頭蓋内交通型 VM (sinus pericranii など)	侵襲は大きい切除可能	頭蓋内への交通路の遮断などを要する
流出静脈拡張型 VM	切除には影響少ない	血栓症のリスク大で、流出路の結紮などを要する
神経障害リスクの大きい VM (橈尺骨間など) 静脈石や高度な線維化などの有痛性硬結 VM 周辺組織の肥大や変形	切除可能な場合あり 治療可能 治療可能	無麻酔での硬化療法が安全。乳幼児は不可 治療困難 治療困難

VM: venous malformation, LIC: localized intravascular coagulopathy

20 ml/body までが目安である。濃度は Et で 90~100%, Po は 1~3%, EO は 5% が頻用される。

著者は、外来治療や皮膚皮下浅層病変、麻痺発生などを危惧する症例などには Po を、深在部や Po 無効例には Et を主に使用している。

## Ⅳ VM に対する硬化療法の適応と治療のタイミング

### 1 硬化療法の適応

血管奇形全般において、整容的または機能的な症状を有するものが治療の適応となり、画像検査で偶然発見されるような無症候性の血管奇形は、それが放置され増悪した時に治

療困難となることが予想される場合を除き治療適応とならない。

硬化療法の適応は多くの場合、切除術との比較において決定される(表2)。

切除術では、修正手術を考慮しなければ、限局性小病変では単一回の治療ですむ。しかし、浸潤性 VM では完全切除には正常組織の合併切除を要する。皮膚浸潤例では皮弁や植皮による被覆が必要な場合があり、神経を巻き込む症例では神経の合併切除から半永久的な麻痺症状を招く場合がある。巨大 VM や多発性 VM などの高度な LIC を伴う症例では、術中および術後出血の危険性がある。巨大 VM に対しては、遊離皮弁などの組織移植を用いて一期的切除可能な場合もあるが、部分切除では、術後一時的に減量されるものの、短期間に残存 VM が再増大することがある。

一方、硬化療法では皮膚癬痕を伴わずに治療できることが多いが、術後合併症として皮膚壊死のリスクがある。小さなVMでも複数回の治療を要する場合があり、巨大VMでは数十回の治療を行っても病変の完全消失を期待できないこともある。正常組織の損傷が少ないため、皮膚浸潤のあるVMでも正常皮膚を残し得る。神経損傷の危険性もあるが、一過性であることが多く、特にPoではそのリスクが少ない。LICが高度な症例でも硬化療法は可能である。硬化剤使用量に限界があり、巨大VMを1回で治療することはほぼ不可能だが、段階的に治療を継続できる。しかし、途中経過において治療間隔が2年以上といった長期にあいてしまうと、残存病変が再増大してしまうことがある。

眼窩球後部のVMに対する硬化療法は視神経や外眼筋を含めた視機能障害のリスクが大きい。切除手術では術中に頭蓋骨除去などの大きな侵襲が加わる場合もあるが、緊急性の高い場合などは切除を選択すべきであろう。頭蓋内交通型のVMに対する硬化療法では、結紮術やコイル塞栓術による頭蓋内交通路の遮断などを要する。流出静脈が高度に拡張し正常な主幹静脈に直接流出するVMにおいても、血栓塞栓症のリスクが大きいため、流出路の結紮などの処置を術前または術中に行うべきである。主要な神経を巻き込んでいる可能性が高いか、もしくは術後コンパートメント症候群の発症が予想される部位では、Poによる無麻酔での硬化療法が比較的安全である。

以上から硬化療法は整容性に優れ対応可能な範囲が広いため、VM治療の第一選択肢とすることが多い。しかし、VM内の静脈石や著しい線維化、VM周辺組織の肥大や変形などに対しては無効と考えられるため、著者は硬化療法をベースに治療を進めたうえで必要に応じて外科的手技を組み合わせる方針をとっている。

## 2 | 硬化療法の開始時期

乳児期のVMではIHやリンパ管奇形(lymphatic malformation: 以下, LM)との鑑別が難しい場合がある。乳児期のリンパ管系は一般に未熟であり、LMでは生後1歳程度までに縮小傾向を示すものがある<sup>7)</sup>。したがって、乳児期では慎重に経過観察し、原則として1歳を過ぎてから硬化療法を行う。筋肉内VMでは、術後合併症として起こり得る麻痺や拘縮の観察とその予防のための術後理学療法必要性があり、原則的に患者本人の協力が得られる3歳以降を治療適応としている。

## IV 硬化療法の実際

### 1 | 準備物品

穿刺針(留置針, カテラン針, 翼状針など), 輸液延長チューブ, 三方活栓, 1~20 mlの注射器, 硬化剤, 生理食塩水(生食), duplex scan エコーを準備し(図1), 透視下では非イオン系造影剤, X線透視装置を追加する。著者は穿刺時のみでなく施術中も主にエコーガイド下での硬化療法を行っており、穿刺針は22Gカテラン針を頻用している。

### 2 | フォーム硬化剤の作り方

PoやEOを入れた注射器と硬化剤量の1~4倍の空気を入れた注射器を三方活栓で接続し、両者をすばやく混和すると、瞬時に白く混濁したフォームとなる。空気塞栓防止目的に炭酸ガスを混和する場合もある。気体量が少ないとフォームが分離しやすいため、著者は1:4の割合にしている。

界面活性剤系硬化剤では炭酸ガスや空気と混和し微小な泡(マイクロフォーム)にすることが容易で、薬効も高まる。

エコーガイド下での視認性が高く、治療効

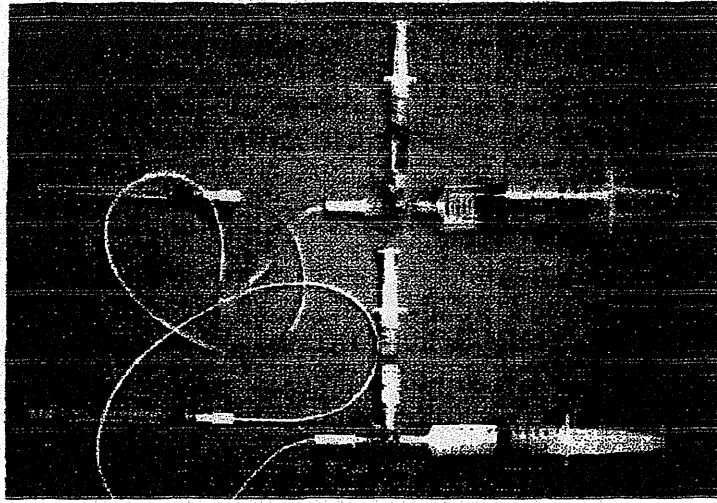


図1 硬化療法の穿刺セット

22Gカテラン針，小児用輸液延長チューブ，三方活栓，2.5 mlと10または20 mlの注射器が連続したラインに接続され，硬化剤が満たされている（上：エタノール，下：ポリドカノールフォームのセット）。

果も向上することから，近年著者はPoのほぼ全例をフォームにして用いている。

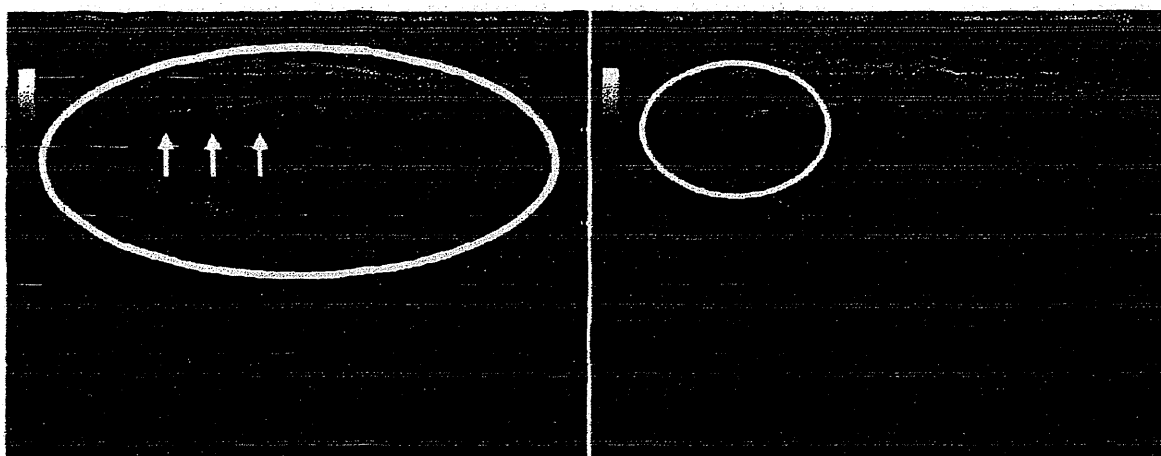
### 3 | 硬化療法の手技

小児や大量の硬化剤使用を要する症例では入院のうえ，全身または局所麻酔下に硬化療法を施行する。尿道カテーテルを留置し，十分量の補液を行って腎血流・尿量を確保する。全身合併症の予防と予知のために心電図，経皮的動脈血酸素飽和度（SpO<sub>2</sub>），終末呼気二酸化炭素濃度（ETCO<sub>2</sub>）などをモニターする。

まずカラードップラーエコーにて病変範囲と性状を確認し，同ガイド下に穿刺する（図2）。エコープローブの長軸方向から刺入すると針全体の確認ができ，方向などの調節が容易となる。病変内刺入の確認には内容液吸引が一般的ではあるが，内腔の小さな病変では吸引困難であり，Etを用いる場合には穿刺針内凝血を起こすことがある。このため，著者はエコーガイド下にごく少量（0.1 ml程度）の硬化剤試験注入で病変外漏出のないことを確認している。必要であれば透視下に造影剤の注入を追加し，造影剤流出の速度と方

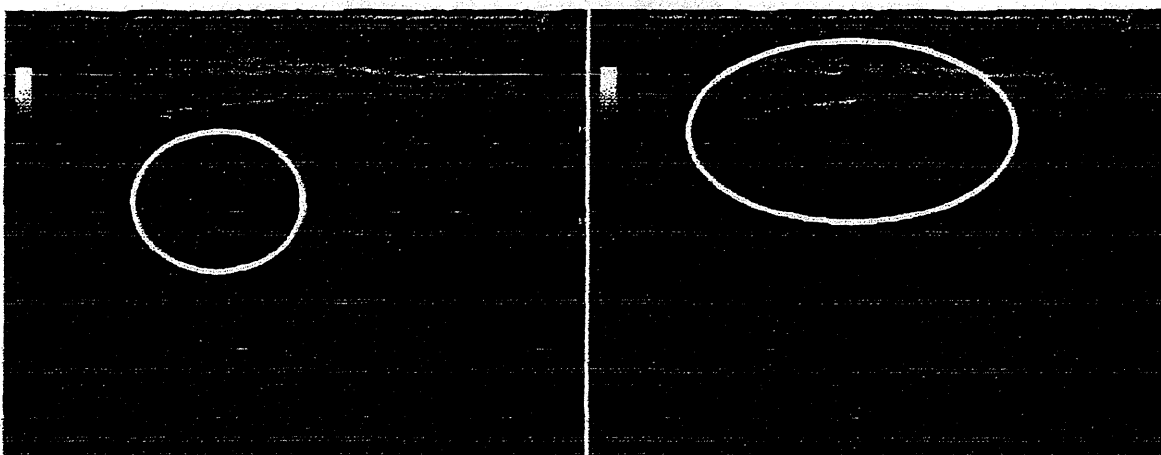
向を検討し，危険部位への流出がないことを確認したうえで硬化剤の注入を開始する。

硬化剤を注入すると，硬化部分がエコーにて高輝度となり，細かい凝血塊の動きも観察される。浅在部から治療すると音響陰影により深部病変の状態が観察できなくなるため，深部から先に治療を進めるのがよい。同一穿刺部位から1回0.2～1.0 ml程度の硬化剤注入を断続的に繰り返し，エコー下に硬化剤の停滞を認め，触診で十分に硬くなっていると判断できれば次の穿刺部位に移行する。同一部位からの多量注入よりも，早めに別部位の穿刺に移行し時間をおいてから元の部位に戻る方が，皮膚壊死などの合併症が少ない。プローブを1カ所に固定せず，刺入中も病変全体を見るようにする。VM周囲の圧迫などを行えば，硬化剤曝露時間が長くなり効果が強まる。駆血帯使用も硬化剤を長時間曝露させ得るが，駆血解除時に病変内への動脈血の流入が先に起こり，続いて高圧となった静脈血とともに大量の血栓や硬化剤が急速に体循環に戻ることから，全身性の合併症の危険性が高まる。したがって，現在著者はエアーター



(a) 病変内 (楕円) にカテラン針 (針) が刺入された。

(b) カテラン針の先端 (楕円) から無水エタノールを 0.2 ml 注入した。



(c) エタノールを 0.5 ml 追加注入し、咬筋深部 (楕円) に硬化剤が流入している。

(d) エタノールを合計 2.5 ml 注入し、咬筋内病変全体 (楕円) に硬化剤が注入された。

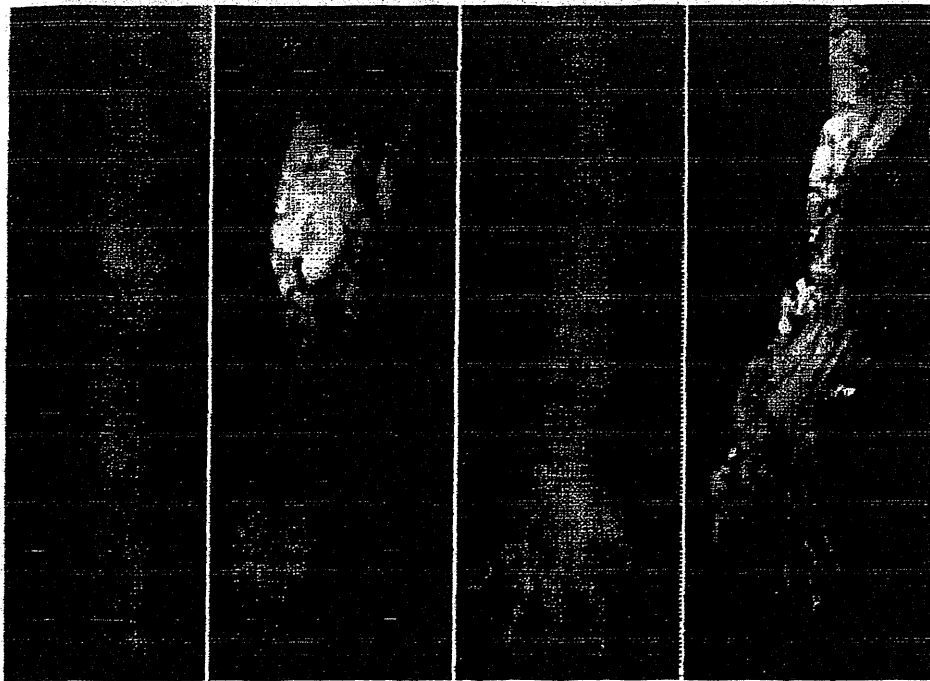
図 2 咬筋内静脈奇形の硬化療法におけるエコー画面

ニケットでの駆血は禁忌と考えている。筋肉の急激な収縮も同様の危険があり、包帯などでの圧迫が完了するまでは麻酔覚醒はしない方がよい。

透視下注入の際は、最初の造影剤注入量を目安に造影剤加硬化剤を注入し、数分ごとに繰り返す。1回 5 ml 以上を一気に注入することもあるが、硬化剤の急速大量注入は合併症の危険が増す。硬化が進むと徐々に造影剤の流れに変化が起き、造影剤が停滞する。硬化剤と造影剤の混和比率に関して、著者は無水 Et 8~9 ml に対して造影剤 2~1 ml, 3% Po 2 ml に対して造影剤 2 ml と空気 6 ml としている。

術中に肉眼的ヘモグロビン尿を認めた場合はその時点で治療を終了する。多くの場合、大量補液を付加することで尿は正常化するため、近年ハプトグロビン点滴静注を行うことはほとんどない。

外来治療でも硬化療法の手技は不変だが、補液や尿道カテーテル留置は行わない。帰宅を考慮し、硬化剤は前記最大投与量の半分以内、Po フォームであれば通常 1A (3% Po 2 ml + air 8 ml) までに留めて、術後は数分間臥位にて安静保持後、座位にて vital signs が安定していることを確認してから歩行を許可する。術後の運転などは禁じる。



- (a) 治療前の右上肢  
右上肢全体にわたり青色調と腫大を認め、高度の疼痛を有する。
- (b) 治療前の右上肢 MRI (T2 強調脂肪抑制冠状断)  
皮下および筋肉内に high intensity を示す VM を認める。
- (c) Et と Po による硬化療法 6 回施行後の右上肢  
数カ所に皮膚瘻痕を認めるが、青色調と腫大および上肢下垂時の疼痛が著明に改善した。
- (d) 硬化療法 6 回施行後の右上肢 MRI (T2 強調脂肪抑制冠状断)  
皮下および筋肉内の VM は減少を認めるものの、まだ大量に残存している。

図3 患者：13歳，女兒，右上肢全体から右前胸部右背部に連続する巨大浸潤性 VM

a | b | c | d

#### 4 術後療法

術後は病変内への血液流入を防ぐため、原則として患肢挙上と軽度圧迫を術後約1週間続ける。皮膚壊死が懸念される場合は外用剤などにて湿潤環境に保つ。筋肉内病変治療後はコンパートメント症候群の発生に留意し、拘縮予防のために術後数日からストレッチングなどを行う。巨大病変では治療の繰り返しが必要であり、数カ月間隔でエコーやMRIなどで評価を行う。

#### V 合併症

自験例における合併症の割合は、全身性3.6% (ヘモグロビン尿3.4%、肺塞栓疑い0.3%、Poでの血圧低下0.1%など)、局所性14% (皮膚粘膜などの小潰瘍10.3%、大潰瘍0.7%、筋拘縮1.5%、神経麻痺1.5%など)であった<sup>8)</sup>。

皮膚壊死を避けるには、①表在性病変には

Poを使用する、②針位置が浅くなりすぎないように術中エコーにより確認する、③注入時に過度の圧力をかけないようにする、④治療中は周辺および末梢の皮膚色変化を頻回に観察する、などが重要である。

神経麻痺は運動・知覚ともにほとんどが一時的であるが、長期間持続するものもある。麻痺が出現した場合は、早期にステロイドの全身投与によって腫脹軽減を図り、さらにメコバラミンを投与し、長引く場合はリハビリテーションを行う。麻痺が高率に危惧される症例では極力無麻酔覚醒下で硬化療法を行い、Et注入を避け、Poなどを使用する。覚醒下では、麻痺が生じてすぐに治療を中止すると翌日には完全に回復していることがほとんどである。

肺高血圧症と肺血栓塞栓症は時に致死的でさえある。予防策として、①流出路拡張型を避ける、②硬化剤投与量を少なくし急速投与を避ける、③駆血をしない、などがある。

## 代表症例

**患者：13歳，女児，右上肢全体から右前胸部右背部に連続する巨大浸潤性VM**

変形・色調異常と疼痛による日常生活困難を主訴に初診した。生下時より右上肢から胸部の青色調を呈する皮膚と右上肢の腫大を認めていた。成長に伴い色調，病変の腫大が増強し，上肢下垂時に疼痛が出現・増悪した。上肢痛は，約10分ごとに腕を拳上しなければならないほどに増悪し日常生活での支障が生じた。近医を転々としたが，治療法はないといわれていた。

初診時，右上肢から胸背部の広範囲に浸潤する筋肉内および皮下VMを認めた（図3-a, b）。疼痛などの機能的症状と変形・変色の改善を目的に長期的な硬化療法を計画した。

中学生であり，遠方からの来院であることを考慮して，治療は学校の長期休暇を利用し，1回約1週間の入院で年に1~2回の治療を行った。毎回の治療で，EtならびにPoをとともにほぼ限界量（Et約20ml，1%Po約10ml）まで同時に使用した。Poは，神経損傷や皮膚壊死の危惧される部位に主に使用した。2回の治療後から授業中に腕を拳上する必要がなくなり，6回治療後ではテニスなどの運動も可能となり外観・機能ともに改善した（図3-c, d）。しかし，MRIなどでも依然VMは大量に残存しており，LICによる凝固異常もフィブリノーゲン118mg/d，FDP27.5 $\mu$ g/m，D dimer21.3 $\mu$ g/mと続いているため，現在も治療を継続している。

## まとめ

静脈奇形（いわゆる海綿状血管腫）につい

てその特徴と硬化療法の要点を概説した。切除が困難な静脈奇形が少なくない中で硬化療法の有用性は非常に高く，形成外科医にとって是非習得しておくべき治療法である。

## 《引用文献》

- 1) Enjolras O, Wassef M, Chapot R : Introduction : ISSVA classification. Color Atlas of Vascular Tumors and Vascular Malformations, ppl-11. Cambridge University Press, New York, 2007
- 2) Mazoyer E, Enjolras O, Laurian C, et al : Coagulation abnormalities associated with extensive venous malformations of the limbs ; Differentiation from Kasabach-Merritt syndrome. Clin Lab Haematol 24 : 243-251, 2002
- 3) Cabrera J, Cabrera J Jr, Garcia-Olmedo MA, et al : Treatment of venous malformations with sclerosant in microfoam. Arch Dermatol 139 : 1409-1416, 2003
- 4) Pascarella L, Bergan JJ, Yamada C, et al : Venous angiomas ; Treatment with sclerosant foam. Ann Vasc Surg 19 : 457-464, 2005
- 5) Orsini C, Brotto M : Immediate pathologic effects on the vein wall of foam sclerotherapy. Dermatol Surg 33 : 1250-1254, 2007
- 6) Mimura H, Fujiwara H, Gobara H, et al : Polidocanol sclerotherapy for painful venous malformations ; Evaluation of safety and efficacy in pain relief. Eur Radiol 19 : 2474-2480, 2009
- 7) Dubois J, Garel L, Abela A, et al : Lymphangiomas in children : Percutaneous sclerotherapy with an alcoholic solution of zein. Radiology 204 : 651-654, 1997
- 8) 佐々木了 : 皮膚軟部組織の血管奇形に対する硬化療法の臨床的検討. 日形会誌 25 : 250-259, 2005

## 《ABSTRACT》

### Sclerotherapy for Venous Malformation

Saoru Sasaki, MD, PhD\*

I describe the indication, starting age, maneuver, and complications of sclerotherapy for venous malformation in this article. My preferred sclerosing agents are absolute ethanol and polidocanol. The starting age of sclerotherapy should be later than one year old in most cases of venous malfor-



mation, and later than three years old in cases of intramuscular venous malformation which require rehabilitation such as self-stretching to prevent muscular contracture after sclerotherapy. Sclerotherapy may be accepted as first line therapy for most venous malformation because it has good aesthetic and functional outcomes, and has feasibility even for cases that have no surgical indication such as invasive and giant venous malformation. How-

ever, it is invalid for situations such as phleboliths and severe fibrosis in venous malformation. Therefore, surgical procedures are still required for the treatment of venous malformation in combination with sclerotherapy.

---

\*Center for Vascular Anomalies, Department of Plastic Surgery, KKR Tonan Hospital, Sapporo 060-0001

<原 著>

## 上肢の静脈奇形に対する硬化療法 ～治療効果を阻害する要因の検討～

長尾宗朝\*・佐々木 了\*\*・古川洋志\*\*\*・齋藤典子\*\*・山本有平\*\*\*

### A Clinical Study of Sclerotherapy for Venous Malformation of an Upper Extremity

Munetomo NAGAO, M.D., Ph.D.\* , Satoru SASAKI, M.D., Ph.D.\*\* , Hiroshi FURUKAWA, M.D., Ph.D.\*\*\* ,  
Noriko SAITO, M.D., Ph.D.\*\* and Yuhei YAMAMOTO, M.D., Ph.D.\*\*\*

\* *Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Iwate Medical University, School of Medicine,  
Iwate, 020-8505*

\*\* *Vascular Anomaly Center, KKR Tonan Hospital, Hokkaido, 060-0001*

\*\*\* *Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Hokkaido University, School of Medicine,  
Hokkaido, 060-8638*

#### 和文要旨

上肢の静脈奇形（以下VM）は、腫脹、疼痛などを主訴に外来を受診することが多い。それに対し当科では、経皮的硬化療法を積極的に行ってきた。その結果から、治療効果を阻害する要因につき検討を行った。

対象は、北海道大学病院形成外科で1992年8月より2006年12月まで硬化療法により治療を行った上肢のVM22症例とした。部位、治療回数、合併症などを踏まえ治療効果の検討を行ったところ、ほぼ満足のいく症例（good以上）が59%、改善はあるものの不満が残る症例（fair）が41%であった。さらに条件別に検討を加えたところ、筋肉内病変を有する症例のうちfairの症例が63%、流速がintermediate flow typeでは67%、過去に切除歴を有する症例で57%認められた。このような条件により治療効果が出づらいものと考えられ、疼痛などの症状の改善と上肢機能の保持とのバランスを考慮しつつ、治療を進めていく必要があるものと思われた。

**Key Words** : 静脈奇形, 上肢, 硬化療法, 筋肉内病変

#### 英文アブストラクト

Twenty-two patients (6 males, 16 females) with venous malformation (VM) of an upper extremity, who were treated by sclerotherapy at our institute between 1992 and 2006, were included in the present study. Ethanol and polidocanol were used for sclerotherapy and quality of life was evaluated after treatment by questioning patients about topics including subjective symptoms and physical and social functioning.

The efficacy of sclerotherapy was rated as good or excellent in 59% of patients, and the other 41% evaluated the efficacy as fair. Regarding those who evaluated the efficacy as fair, several significant factors were found that reduced the effect of sclerotherapy, including the presence of an intramuscular venous malformation (63%), intermediate flow type VM (67%), and recurrence after surgery at other hospitals (57%). Such patients need several treatment sessions and have a higher risk of complications.

In conclusion, we consider sclerotherapy for VM of an upper extremity to be an effective treatment. However, care should be taken when treating patients with the indicated risk factors.

**Key Words** : venous malformation (VM), upper extremity, sclerotherapy, intramuscular lesions

\*岩手医科大学形成外科 \*\*KKR 斗南病院血管腫血管奇形センター \*\*\*北海道大学形成外科

2011年6月27日受領

2011年10月11日掲載決定

## はじめに

上肢の静脈奇形 (venous malformation, 以下 VM) は、腫瘍の触知、腫脹、疼痛などを主訴に外来を受診することが多い。筋肉内にも病変が及んでいることが多く、整容的に露出する部位でもあるため、治療は慎重に進める必要がある。当科においてはこれまで、このような血管奇形に対して、経皮的硬化療法による治療を積極的に行ってきた。上肢の VM に対する硬化療法による総合改善度の結果から、治療効果を阻害する要因につき検討を行ったので報告する。

## 対象および方法

北海道大学病院形成外科において1992年8月より2006年12月まで、硬化療法で治療を行い、6ヵ月以上経過観察し得た上肢の VM22 症例を対象とした。病歴、臨床所見に加え、カラードップラーエコー、CT、MRI、RI 血液プールシンチグラフィーなどを用いて精査を行い、診断を血管奇形における ISSVA 分類<sup>1)</sup>に準じて行った。

硬化剤は無水エタノール、1%ポリドカノール (エトキシスクレロール<sup>®</sup>, カイゲン) を使用した。

流速は、カラードップラーエコーで測定し 6.5 cm/s 未満を slow flow type, 6.5 cm/s 以上 20.0 cm/s 未満を intermediate flow type と分類した。20.0 cm/s 以上の病変は AVM (arteriovenous malformation) と診断し、今回の症例には含まなかった。

治療効果の評価は、当科における過去の報告<sup>2)</sup>に準じ、機能的症状改善度と肉眼的縮小度の両者を合わせ、総合改善度として、術後定常状態となる時点、すなわち最終治療から6ヵ月以上経過した時点もしくは最終治療の直前に行った。

機能的症状改善度は患者の自覚症状をもとに、excellent; 症状消失, good; 症状が高度に改善しあまり気にならない, fair; 改善しているがまだ不満足, poor; 改善なし・悪化に分けた。肉眼的縮小度は、患者ならびに同一担当医の評価で行い、excellent; 外観正常, good; 高度に改善しあまり気にならない, fair; 改善しているがまだ不満足, poor; 改善なし・悪化に分類した。

その両者の低いほうで評価し、合併症で二次的外科治療を要した場合は、さらに一段階低く評価した。総合改善度における excellent, good を合わせて有効率とした。

以上を踏まえ、性別、年齢、部位、流速、他院での治療歴、治療回数、合併症、治療効果につき臨床的検討を行った (表 1)。

## 結 果

1) 性別; 男性が6例, 女性が16例と女性が73%を占めた。

2) 年齢; 平均28.0歳。治療開始年齢は、本人より症状の訴えが出てくる10歳から30歳で最も多く、11例であった。50歳以上は5例 (23%) であった。

3) 病変部位; 手指9例, 手掌4例, 前腕6例, 上肢, 肩, 胸部など広範な病変が5例であった。また、筋肉内に病変が及ぶものは8例 (36%) であった。

4) 流速; Slow flow type が16例, intermediate flow type が6例であった。

5) 他院での治療歴; 他院で切除手術が行われ、再発のため当科紹介となった症例は7例 (32%) であった。

6) 治療回数; 1回から17回であり、平均治療回数は3.6回、中央値は2回であった。

7) 合併症; 局所におけるおもな合併症は22症例中3例、14%に認められた。そのうち筋拘縮が1例、皮膚潰瘍後の瘢痕拘縮が1例、橈骨神経麻痺が1例あり、術後リハビリテーションを要した。皮膚に小潰瘍を認めたものの保存的に治癒し、後遺症なく経過した症例が9例であった。コンパートメント症候群、指の壊死、脱落などの合併症は認めなかった (図 1)。

8) 治療効果 (総合改善度); Excellent 7例, good 6例, fair 9例, poor 0例, 有効率 (good 以上) が59%であり、改善はあるものの不満が残る症例 (fair) が9例 (41%) であった (図 2)。

以上の総合改善度の結果から、筋肉内病変の存在や流速、他院治療歴の有無など、条件別に fair 症例の割合を検討し、治療効果を阻害する要因につき考察を行った。

まずは、評価にいたる代表症例を以下に供覧する。

## 代表症例

症例 8; 5歳, 女児。

診断; 左母指 VM。

生下時より左母指に青色斑を認めていた。徐々に青色調が濃くなり、腫脹も認めたため当科紹介受診となった。初診時のエコー所見では、病変は皮下に局限しており、流速は intermediate flow type であった。

全身麻酔下に経皮的硬化療法を行った。治療回数は計2回で、初回は無水エタノールを1.0 ml 使用した。その約3ヵ月後に2回目の治療を行い、無水エタノールを2.0 ml 使用した。術後一時的に皮膚に小潰瘍を認めたが、保存的に治癒した。

病変は消失し、外観的にも非常に良好な結果が得ら

表1 症例一覧

症例	年齢/性別	部位	筋肉内病変	流速*1	他院治療歴	治療回数	合併症*2	治療効果
1*3	16/男	右手・母指	+	Intermediate		17	筋拘縮・皮膚潰瘍	Fair
2	52/女	左手		Intermediate	あり	4	(皮膚潰瘍)	Fair
3	57/女	左環指		Intermediate	あり	2	(皮膚潰瘍)	Excellent
4	23/女	肘・上腕・前腕	+	Slow	あり	14		Good
5	11/女	右肩		Slow	あり	2		Good
6	20/男	左前腕	+	Slow	あり	2		Fair
7	32/男	右環指		Intermediate		9		Fair
8	5/女	左母指		Intermediate		2	(皮膚潰瘍)	Excellent
9	20/女	右環指		Slow		2		Good
10	31/女	母指球筋	+	Slow		5	一過性内転拘縮	Fair
11	14/女	左前腕	+	Slow		1	橈骨神経麻痺	Good
12	11/女	右上肢, 肩, 胸部	+	Slow		7		Good
13	54/女	左中指		Slow		1	(皮膚潰瘍)	Excellent
14	39/女	右示指		Slow		1	(皮膚潰瘍)	Excellent
15	39/女	右中指		Slow		1		Excellent
16	13/男	左前腕		Slow		1		Fair
17	22/男	右手		Slow		1		Excellent
18	15/女	左示指		Slow		1		Excellent
19	68/女	右前腕		Slow		1	(皮膚潰瘍)	Fair
20	15/男	右上肢	+	Slow	あり	4	(皮膚潰瘍)	Fair
21	55/女	右前腕	+	Intermediate	あり	1	(皮膚潰瘍)	Fair
22	5/女	右中指		Slow		1	(皮膚潰瘍)	Good

\*1流速；Slow flow type 最大流速 6.5 cm/s 未満 Intermediate flow type 6.5~20.0 cm/s

\*2(皮膚潰瘍)は、術後経過中に皮膚潰瘍を認めたものの、保存的に上皮化し、後遺症なく治癒したもの

\*3太字は、広範囲病変

<合併症>

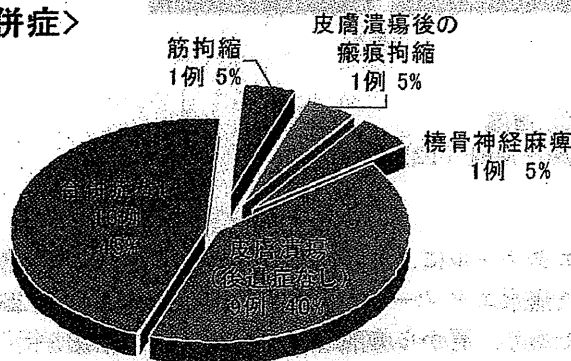


図1 合併症

局所におけるおもな合併症は、全体の14%に認められた。コンパートメント症候群、指壊死、脱落など、その他、重篤な合併症は認めなかった。

<治療効果>

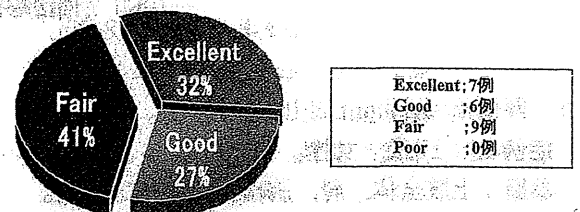


図2 治療効果

有効率 (Good 以上) は、全体の59%であった。



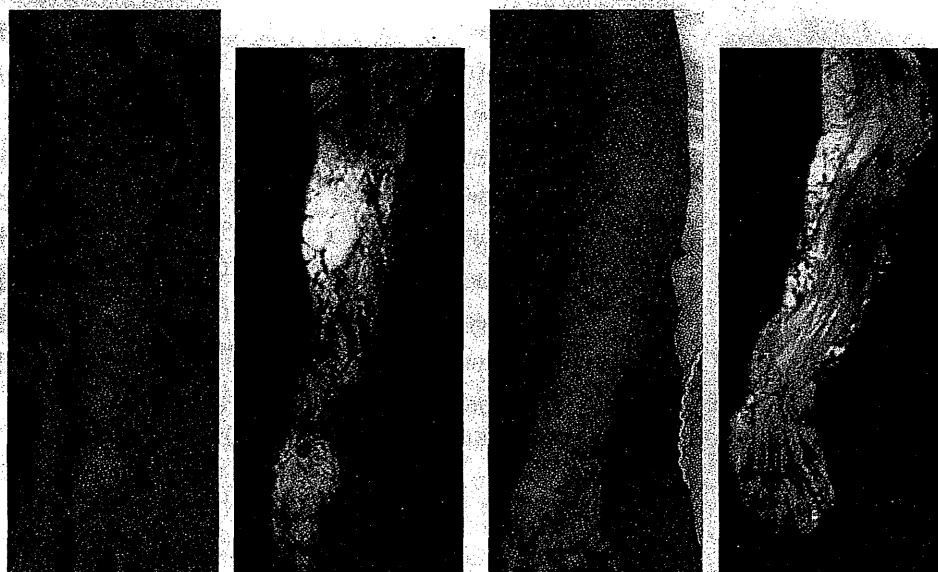
(a)

(b)

図3 症例8

(a) 初診時

(b) 2回目の治療後1年



(a)

(b)

図4 症例12

(a) 治療前写真とMRI (T2) 画像

(b) 7回治療後6ヵ月の写真とMRI (T2) 画像

れ、評価は excellent とした (図3)。

症例12: 11歳, 女性。

診断: 上肢全体, 肩, 胸部までの巨大VM。

生下時より, 右上肢全体の腫脹と, 肩, 胸部にいたる青色斑を認めていた。近医にて経過観察されていたが, 徐々に疼痛が強くなり, 当科受診となった。

初診時, 上肢の下垂により強い疼痛が出現し, 日常的に上肢を挙上していなければならないことが多かった。筋肉内病変も存在し, 流速は slow flow type であった。

まず, 疼痛, しびれの症状が強い前腕尺側から無水

エタノールによる硬化療法を開始した。1回に使用した無水エタノールの量は 16 ml~40 ml, 平均 28.7 ml であり, 肩から胸部まで7回に分けて治療を行った。

現在のところ, 特に目立った合併症は認めていない。2回の治療を終了した時点で, 多少の疼痛の残存を認めるものの, 上肢の下垂が可能となった。外観上も, 皮下病変による青色斑, 腫脹の減少を認め, 画像上も病変の縮小を認めている。現在も治療中であるが, 症状の改善を認めており, 評価は good とした (図4)。

## 考 察

上肢、特に前腕より末梢は、日常生活においても、絶えず自他ともに視界に入る露出部位であり、かつ繊細な機能をもつ特殊な部位でもある。

実際に上肢のVMは、表在から腫瘤としてのみ触れることもあり、多施設で手術による切除が行われている。しかし、筋肉内、腱、神経周囲にまで病変が及ぶ場合、完全切除は困難であり、出血、機能損失のリスクも高く、さらに整容的にも瘢痕を伴うこととなる<sup>3)</sup>。そこで近年、切除術に代わる治療法として、硬化療法が注目されてきている。硬化療法は、手術侵襲が少なく、完全治癒とはいかないにしても、それにより疼痛や腫脹を軽減させることが可能であり<sup>4,6)</sup>、われわれも積極的に行ってきた。

当科においてVM全体の治療成績をみた場合、硬化療法の有効率は8割近い良好な結果を出している<sup>2)</sup>。しかし、上肢に限った場合は、その有効率は6割弱と低かった。そのため、上肢において特に治療効果を阻害していると考えられる要因につき検討を行った。

まずは筋肉内病変を有する症例についてであるが、それが8例あり、そのうちfairの症例が5例(63%)であった。筋肉内に病変が存在した場合、合併症の発生率は高く、コンパートメント症候群にも注意が必要となる<sup>3,5-7)</sup>。今回認められた合併症のうち、筋拘縮や橈骨神経麻痺、一過性内転拘縮は、いずれも筋肉内病変を有する症例に発生している。さらに病変の部位が手関節、肘関節などをまたぐような症例、たとえば前腕から上肢全体、あるいはそれ以上に肩、胸部にまで及ぶ広範囲なものなかには、筋肉内病変を有する症例が5例と高率に存在した。その5例のうち3例(60%)がfairの症例であった。広範囲病変では、筋肉内病変が高率に存在することに加え、治療回数や時間を要していることも、治療効果の評価を下げる要因として考えられた。

次に、流速別では、VM全体の当科における治療成績として、slow flow typeの有効率に対しintermediate flow typeでやや下がった結果であった。上肢においても、intermediate flow type 6例に対してfairの症例が4例(67%)認められた。流速により、硬化剤の病変局所への停留量が減少し、治療効果を阻害する要因の1つと考えられた。

そして状態として、他院で切除手術が施行されたのちに、再発、難治のために紹介となり、当科にて経皮的硬化療法を行った症例が7例あり、そのうちfairの症例が4例(57%)であった。これらはおもに、他院での手術既往による瘢痕が病変全体への硬化剤のひ

ろがりや流れを悪くさせたことで、治療効果を妨げたものと考えられた。

治療においては、病変を縮小させ、しびれ、疼痛などの症状を軽減することは当然のことであるが、上肢においては、機能低下を最小限に抑えることが重要であるといえる。以上のような条件を有し、多数回にわたる治療が予想される場合、病変の安易な切除は避け、治療開始時からの治療方針や患者への説明は十分に行っておく必要があると考えられた。

また近年、硬化剤のより効果的な局所停留を促すために、3%ポリドカノールを用いたmicrofoam sclerotherapyが報告されてきている<sup>8)</sup>。これまでに行ってきた1%ポリドカノールと比較しても、良好な治療効果を得ている。今後、無水エタノールの使用により皮膚潰瘍を起こすリスクの高い浅層病変や、重要な神経・血管周囲などでの治療を要する症例への硬化剤の選択<sup>9)</sup>として3%ポリドカノールを用いてmicrofoam sclerotherapyを行うことで、fairの症例に対しても、合併症を回避しつつ、より治療効果が高めることが期待できると思われた。

## 結 語

当科における上肢のVM22症例の総合改善度の結果から、治療効果を阻害する要因につき検討を行った。

条件として筋肉内病変を有する症例や、VMのなかでも流速がより速い症例、過去に切除歴を有する症例などでは、総合改善度fairが過半数をこえ、高い割合であった。以上のような条件を有する場合、上肢の機能保持の観点からも、治療に慎重にならざるを得ず、治療回数も増え、結果的に治療効果が得られにくい要因になるものと考えられた。

長尾宗朝

岩手医科大学形成外科

〒020-8505 岩手県盛岡市内丸19-1

E-mail: munetomonagao@max.odn.ne.jp

利益相反：本論文について他者との利益相反はない。

なお、本論文は、著者および共著者が北海道大学形成外科所属時に経験したものであり、その要旨は、第49回日本形成外科学会学術集会(2006年4月12日~14日、於岡山)において報告したものに加筆を行った。

文 献

- 1) Enjolras, O., Wassef, M. & Chapot, R. : Introduction ; ISSVA classification. *Color Atlas of Vascular Tumors and Vascular Malformations*, 1~11, Cambridge University Press, New York, 2007.
- 2) 佐々木了 : 皮膚軟部組織の血管奇形に対する硬化療法の臨床的検討. *日形会誌*, **25** : 250~259, 2005.
- 3) Hein, K.D., Mulliken, J.B., Kozakewich, H.P., et al. : Venous malformations of skeletal muscle. *Plast. Reconstr. Surg.*, **110** : 1625~1635, 2002.
- 4) Rautio, R., Saarinen, J., Laranne, J., et al. : Endovascular treatment of venous malformations in extremities : result of sclerotherapy and the quality of life after treatment. *Acta Radiol.*, **45** : 397~403, 2004.
- 5) 佐々木了, 大久保佳子, 村住昌彦, ほか : Vascular malformation の分類と治療 : 硬化療法. *形成外科*, **44** : 637~646, 2001.
- 6) 佐々木了, 山本有平, 井川浩晴, 杉原平樹 : 下肢の動静脈異常に対する治療 - 病変 type と grade に応じた硬化療法 -. *形成外科*, **45** : S217~S226, 2002.
- 7) Breugem, C.C., Merkus, M.P., Smitt, J.H., et al. : Quality of life in patients with vascular malformations of the lower extremity. *Br. J. Plast. Surg.*, **57** : 754~763, 2004.
- 8) 齋藤典子, 佐々木了, 古川洋志, ほか : 血管奇形に対する3%ポリドカノール・フォーム硬化療法の経験. *日形会誌*, **30** : 149~154, 2010.
- 9) 長尾宗朝, 佐々木了, 古川洋志, ほか : 頬・口腔・頸部巨大リンパ管奇形の治療経験. *日形会誌*, **27** : 779~782, 2007.

<症例報告>

# 眼窩内静脈奇形の2例

## — 硬化療法の適応例と非適応例 —

長尾宗朝\*・古川洋志\*\*・佐々木 了\*\*\*・坂本泰輔\*\*\*\*・山本有平\*\*

Key Words : 眼窩内静脈奇形, 眼窩内血管腫, 硬化療法, sinus pericranii (頭蓋骨膜洞)

### はじめに

静脈奇形は、これまで海綿状血管腫と呼ばれてきたが、ISSVA分類<sup>1)</sup>にのっとった診断名として、近年置き換わってきた。静脈類似の血管腔が皮下や筋肉内などに増生する血液貯留性の病変で、その病変の大きさ、分布は多様であり、皮膚をはじめ眼窩、鼻咽腔、四肢、骨、腹部臓器などにみられる。疼痛や発熱、醜状変形、変色、出血などを主訴に来院する。

今回われわれは、眼窩内の静脈奇形に対し、硬化療法を施行し著効した症例と、術前検査の結果から治療を見合わせた症例を経験した。若干の知見を得たため、文献的考察を加え報告する。

### 症 例

症例1 : 82歳, 男性。

現病歴 : 79歳ごろから、右下眼瞼の腫脹を認めた。消退傾向を認めず、81歳時に近医を受診した。前医で局所麻酔下に生検を試みるも、出血過多のため中止となり、右眼窩内静脈奇形が疑われ当科紹介となった。

既往歴 : 高脂血症。

家族歴 : 特記事項なし。

初診時所見 : 右下眼瞼外側に約1.5 cm大の腫脹を認めた。青色調、弾性軟であり、頭部の前屈により腫脹が増強し、視野狭窄の訴えがあった(図1a, b)。

画像所見 : MRI検査では、明らかな頭蓋内との交通は認めず、限局性に右眼窩内で外眼筋に隣接した

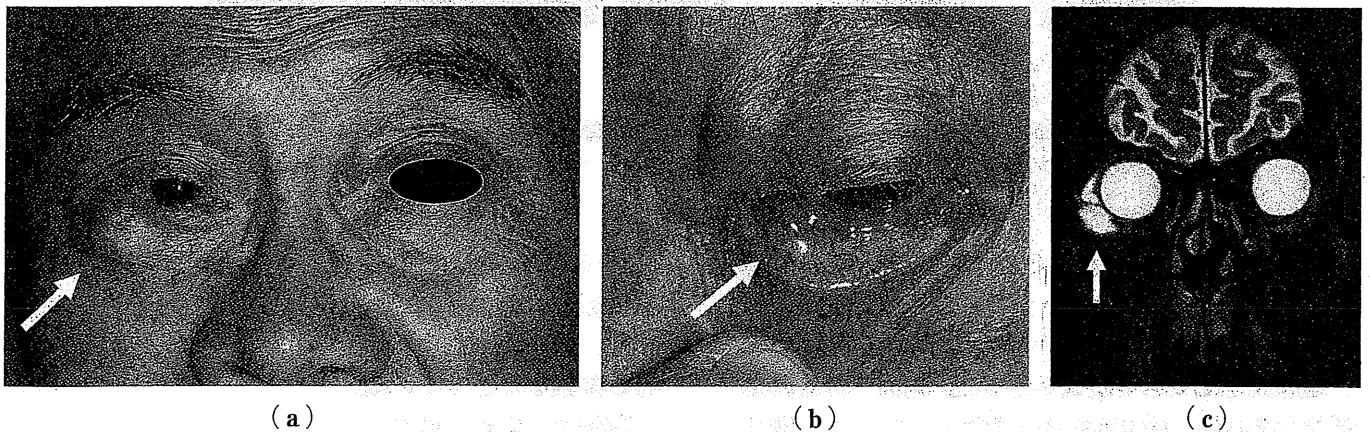


図1 症例1 初診時所見

- (a) 右下眼瞼外側に、隆起性病変を認め、頭部前屈時に増強した。
- (b) 結膜側にも青色調の隆起が認められた。
- (c) MRI所見 : 右眼窩内で外眼筋に隣接し、限局性にT2強調(脂肪抑制)画像で高信号を呈する病変を認めた。

※各矢印は病変部位

\*岩手医科大学形成外科 \*\*北海道大学医学部形成外科 \*\*\*KKR 札幌医療センター斗南病院血管腫血管奇形センター

\*\*\*\*日鋼記念病院形成外科

2011年3月3日受領

2011年10月26日掲載決定



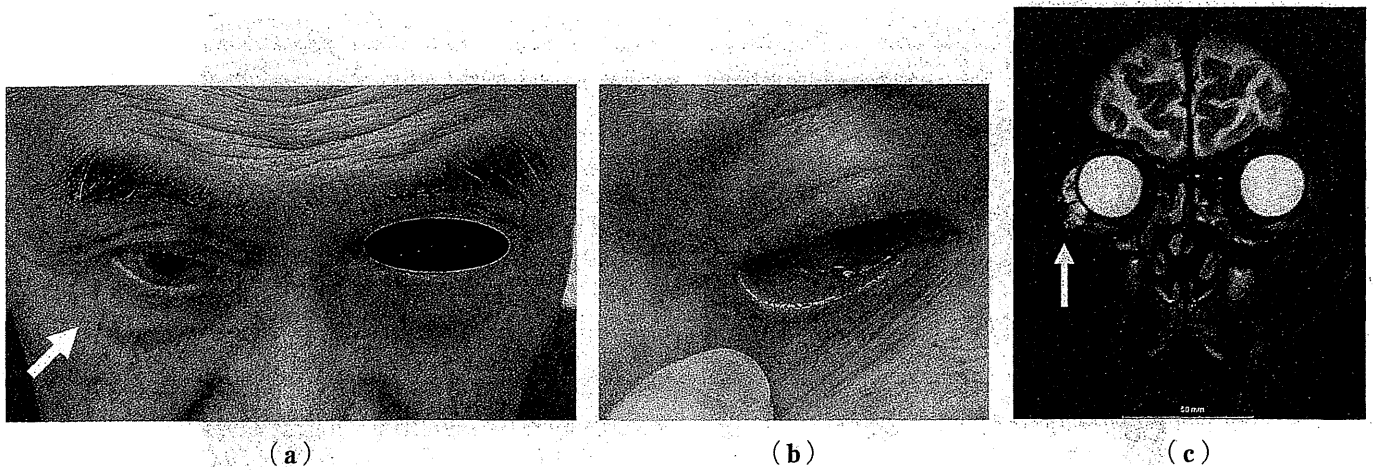


図2 症例1 2回目の治療後6ヵ月

- (a) 頭部前屈時でも、右下眼瞼外側の腫脹は認めない。
  - (b) 結膜側の青色隆起も改善した。
  - (c) MRI (T2強調(脂肪抑制)画像) 上も、病変の縮小を認める。
- ※各矢印は病変部位

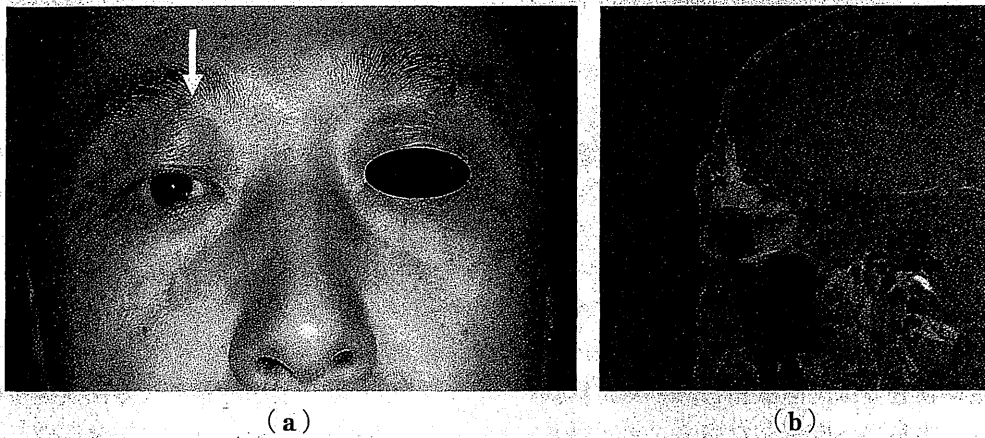


図3 症例2 初診時所見

- (a) 右上眼瞼に頭部前屈で増強する約1.2 cm 大の腫脹を認めた(矢印)。
- (b) 前医のMRI (図は T2 強調画像, 矢状断) では、病変は頭蓋内との交通が疑われた。

T2 強調画像で高信号を呈する血管性病変を認め (図 1c), 静脈奇形と診断した。

治療経過: 明識下に病変へ 22G 針の直接穿刺を行い, 造影剤を注入して透視を行った。局所への造影剤の貯留を確認後, 硬化剤の注入を行っていった。硬化剤は, 1%ポリドカノール (ポリドカスケロール®, ゼリア新薬) を 1.0 ml, 病変へ局所注入した。さらに 4ヵ月後に 2 回目の経皮的硬化療法を施行した。2 回目も明識下に 3%ポリドカノールを用いたフォーム硬化療法を行った。フォームの作成方法は, Tessari らの方法<sup>2)</sup>を参考に, 3%ポリドカノールに対して硬化剤の 4 倍量の空気を混合させて作成し, 病変へ 1.0 ml 注入した。

2 回目の治療後 6ヵ月, 下眼瞼の腫脹は著明に改善

した (図 2a, b)。MRI 画像上も, 病変の残存を認めるものの, 縮小をみており (図 2c), 視力障害, 瘢痕形成, 兔眼や眼球運動制限などの合併症も認めず, 良好な経過をたどっている。

症例 2: 50 歳, 男性。

現病歴: 48 歳ごろから, 右上眼瞼周囲に腫脹を自覚した。徐々に気になりだし, 近医を受診したところ, 右眼窩内の静脈奇形が疑われ, 治療目的に当科紹介となった。

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 特記事項なし。

初診時所見: 右上眼瞼に約 1.2 cm 大の腫脹を認め, 頭部の前屈による腫脹の増強を認めた。視力障害や眼球運動制限などは認めなかった (図 3a)。眼窩内

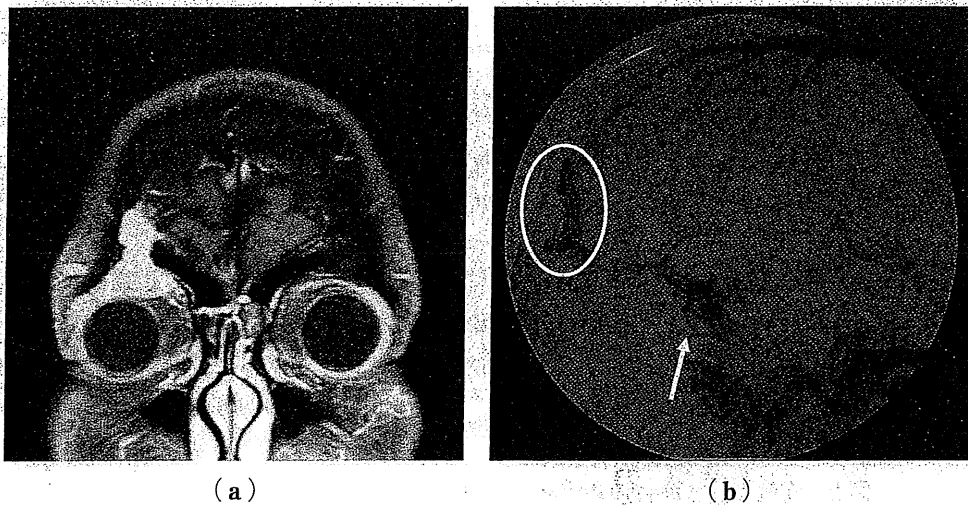


図4 症例2 画像所見

- (a) Ga 造影下 T1 強調画像，冠状断：当院で造影 MRI を行い，明らかな頭蓋内に続く病変のひろがりを確認した。
- (b) 右内頸動脈からの造影による血管造影検査：静脈相の側面像において，病変と考えられる部位に血液の貯留（丸印）を認め，上眼静脈より頭蓋内静脈洞への流出（矢印）を認めた。

静脈奇形を疑うも，前医での MRI 画像において，病変の頭蓋内との交通が疑われた（図 3b）ため，当院にて再度精査を行った。

画像所見：当院で再撮影を行った MRI では，右眼窩上壁に骨欠損部分を認め，頭蓋内から右眼窩内へ連続するガドリニウム造影 T1 強調画像や T2 強調画像で高信号に描出される病変を認めた（図 4a）。右内頸動脈からの血管造影検査では，静脈相において造影剤が病変と考えられる眼窩部へ貯留したのち，上眼静脈より頭蓋内静脈洞への流出が認められた。放射線科読影医の診断は，典型的ではないが，眼窩部 sinus pericranii（頭蓋骨膜洞）を疑うとのことであった（図 4b）。

治療経過：以上の画像診断結果から，病変は前頭部の循環の一部として寄与しているため，手術や硬化療法による治療の適応外として，経過観察の方針となった。現在，外来通院しながら，保存的に経過観察中である。

### 考 察

眼窩には，眼球，視神経，外眼筋，涙腺，骨などの多様な組織が存在するため，眼窩の占拠性病変としては，涙腺腫瘍，悪性リンパ腫，眼窩炎性偽腫瘍，静脈奇形，リンパ管奇形などさまざまなものが生じてくる。さらに続発性の病変となると，上顎骨や副鼻腔の腫瘍，その他，転移性腫瘍などもある。そのなかで，今回は2例ともに眼窩内の静脈性病変が疑われた。静

脈奇形は，眼窩内の良性疾患のなかでも，眼窩炎性偽腫瘍，多形腺腫などに次ぐ比較的高頻度の疾患である<sup>3)</sup>。しかし，すべてが外科治療の対象とはならないため，真の頻度は不明とされている<sup>4)</sup>。

一方で，体表面の血管性病変の治療に関しては，近年，出血や瘢痕形成を残す危険性が少なく有効性が高い，硬化療法が第一選択となってきている<sup>5)</sup>。症例1に対しても，前医生検による出血過多の既往，再切除による侵襲や出血のリスク<sup>6,7)</sup>を考慮し，硬化療法による治療を検討した。そうして経皮的硬化療法を施行した結果，前眼部病変の部分縮小であったが，特に瘢痕形成や出血なく症状の著明な改善を得た。切除術に比し，低侵襲でかつ良好な結果が得られた。そのため眼窩内といった特殊な部位においても，今後，硬化療法が切除術に代わる治療法の1つとしての可能性が考えられた。

近年の MRI などによる画像診断の進歩はめざましく，深部病変であっても侵襲なく，より確実な診断が可能となってきている。そのため症例1においては，MRI 画像に加え，体表上の青紫調変化の所見や前医での生検時の出血のエピソードなどから判断して，眼窩内静脈奇形の診断にいたった。しかしながら，硬化療法を進めていく経過のなかで，少しでも他の腫瘍性病変が疑われる場合は，積極的に生検を行うべきであることは常に念頭に置いておかなければならないこととも思われた。

次に症例2であるが，典型的ではないものの，診断

表1 経験2症例の比較

	症例1	症例2
症状：病変部位	眼窩内	眼窩内
構成成分	静脈	静脈
流速	slow	slow
頭部前屈による増強	+	+
周囲との交通	- (眼窩内に限局)	+ (頭蓋内循環に寄与)
診断	眼窩内静脈奇形	sinus pericranii s/o
治療：硬化療法	適応あり	慎重判断
切除術の場合	眼窩骨切りを加えた切除	重篤な神経症状の出現 がなければ治療の適応外

は sinus pericranii などが考えられるとのことであった。Sinus pericranii は、1850年に Stromeyer により報告された疾患<sup>7)</sup>であり、頭蓋骨表面に固着し、板間静脈を介在して頭蓋内静脈洞と交通している静脈の形成異常と定義されている<sup>8,9)</sup>。治療の適応としては、神経症状など重篤症状の出現時に切除術の選択をするとの報告がある<sup>8-10)</sup>。また、近年、sinus pericranii に対して硬化療法による治療を行い良好な結果を得た報告例も散見されはじめている<sup>11-13)</sup>。しかしながら症例2の場合、その病変は、前頭部の血液循環の一部として寄与しているタイプであったため、硬化療法や切除による治療により循環不全が生じ、脳浮腫などの合併症を引き起こす可能性が考えられた。そのため治療の適応外として経過観察の方針となった。

今回経験した2症例は、ともに眼窩局所の腫脹を主訴とし、頭部の前屈により増強する静脈性の低流速病変といった共通項をみた(表1)。そのなかで、症例1は眼窩内に限局した病変であることを術前の画像ならびに術中の造影により確認し、硬化療法を施行した。硬化剤は、初回は1%ポリドカノールを使用した。しかし、これまでに治療を行ってきた1%ポリドカノールは、血管内膜への障害作用が軽度で効果が得られにくく、治療回数が重なるという問題点があった。そこで、2回目の治療には、3%ポリドカノールを用いたフォーム硬化療法<sup>14)</sup>を行い、良好な結果を得た。また、病変は比較的浅層に存在したため、治療のための針穿刺は容易であった。しかし、これが眼窩の深部病変であった場合は、眼窩内への針穿刺の手技により、眼動脈などへの誤注入による失明などのリスクが高まるものと思われた。そのため治療を進めていくなかで、術中に視力などに異常が生じないかを確認する目的で、全身麻酔ではなく明識下での治療を行ったことが、著者らが意識した点としてあげられる。

また、透視を行った際の放射線被曝についてであるが、その線量が増えれば、晩期障害として白内障の発生等が危惧される。具体的線量としては、総線量が約2,000Gyをこえ、1回の線量においても1.5Gy以上になると、そのリスクが高まるとの報告もある<sup>15)</sup>。今回の治療のために検査で用いた透視による1回の被曝量の平均は0.04~0.08Gyであり、まず問題となる被曝線量ではないと考えられた。今後は、残存病変による症状の再燃に留意しつつ、経過観察を行っていく予定である。

眼窩は、骨と皮膚に囲まれた閉鎖空間の中に眼球やその他の組織が存在し、視機能といった重要な機能と、さらには中枢神経にも隣接する非常に特殊な部位である。このような部位における血管性病変の治療については、術前のCTやMRIなどの画像精査はもちろんのこと、必要に応じて血管造影検査を行い、病変部からの血液の流出経路をとらえ、骨への浸潤や周囲交通の有無を評価することが重要であると思われる。そうして血流動態を詳細に把握した結果を踏まえたうえで、硬化療法や切除術の適応を考慮していくべきであると考えられた。そして硬化療法の適応となった場合でも、術中には透視による造影剤の病変への貯留を確認しつつ、慎重に治療を進めていくことは肝心であると思われた。それにより、眼窩内といった特殊な領域であっても、硬化療法により、低侵襲で良好な結果を得られることが示唆された。

## 結 語

2例の眼窩内静脈奇形において、硬化療法の適応例と非適応例を報告した。このように特殊な部位においても、術前の画像評価のもと、慎重に適応を決めていくことで、経皮的硬化療法による低侵襲で良好な結果を得ることが可能であると考えられた。しかしながらそ

の場合でも、治療は明識下に行い、術中に視力などの異常がないかを確認しながら慎重に施行していくことが重要であると考えられた。

古川洋志

北海道大学医学部形成外科

〒060-8638 札幌市北区北15条西7丁目

E-mail : hfuru@med.hokudai.ac.jp

利益相反：本論文について他者との利益相反はない。

本症例は、著者が北海道大学形成外科所属時に経験した症例であり、本論文の要旨は、第52回日本形成外科学会総会・学術集会（2009年4月22～24日、於横浜）において発表した。

## 文 献

- 1) Enjolras, O., Wassef, M. & Chapot, R. : Introduction ; ISSVA classification. Color Atlas of Vascular Tumors and Vascular Malformations, 1~11, Cambridge University Press, New York, 2007.
- 2) Tessari, L., Cavezzi, A. & Frullini, A. : Preliminary experience with a new sclerosing foam in the treatment of varicose veins. *Dermatol. Surg.*, **27** : 58~60, 2001.
- 3) Ohtsuka, K., Hashimoto, M. & Suzuki, Y. : A Review of 244 Orbital Tumors in Japanese Patients during a 21-Year Period : Origins and Locations. *Jpn. J. Ophthalmol.*, **49** : 49~55, 2005.
- 4) 高村 浩 : 眼窩腫瘍の診断と治療 update. *臨眼*, **62** : 1615~1622, 2008.
- 5) 佐々木了 : 皮膚軟部組織の血管奇形に対する硬化療法 of 臨床的検討. *日形会誌*, **25** : 250~259, 2005.
- 6) Cheng, J.W., Wei, R.L., Cai, J.P. & Li, Y. : Transconjunctival Orbitotomy for Orbital Cavernous Hemangiomas. *Can. J. Ophthalmol.*, **43** : 234~238, 2008.
- 7) Stromeyer, L. : About sinus pericranii (Translating of original 1850 Text). *Surg. Neurol.*, **40** : 3~4, 1993.
- 8) 齋藤 亮, 佐々木了, 杉野まり子, ほか : 前頭部 Sinus pericranii の1例. *日形会誌*, **26** : 263~268, 2006.
- 9) Sheu, M., Fauteux, G., Chang, H., et al. : Sinus Pericranii : Dermatologic considerations and literature review. *J. Am. Acad. Dermatol.*, **46** : 934~941, 2002.
- 10) Bisdorff, A., Mulliken, J.B., Carrico, J., et al. : Intracranial Vascular Anomalies in Patients with Periorbital Lymphatic and Lymphaticovenous Malformations. *Am. J. Neuroradiol.*, **28** : 335~341, 2007.
- 11) Kessler, I.M., Esmanhoto, B., Riva, R & Mounayer, C. : Endovascular transvenous embolization combined with direct puncture of the sinus pericranii. *Interv. Neuroradiol.*, **15** : 429~434, 2009.
- 12) Rangel-Castilla, L., Krishna, C., Klucznik, R. & Diaz, O. : Endovascular embolization with onyx in the management of sinus pericranii : a case report. *Neurosurg. Focus*, **27** : E13, 2009.
- 13) Brook, A., Gold, M.M., Farinhas, J.M., et al. : Endovascular transvenous embolization of sinus pericranii. Case report. *J. Neurosurg. Pediatr.*, **3** : 220~224, 2009.
- 14) 齋藤典子, 佐々木了, 古川洋志, ほか : 血管奇形に対する3%ポリドカノール・フォーム硬化療法の経験. *日形会誌*, **30** : 149~154, 2010.
- 15) 秋田雄三, 神宮賢一 : 放射線治療による晩期障害としての白内障発生についての検討. *頭頸部腫瘍*, **24** : 104~108, 1998.