Hyperostomy Syndrome の一症例

(多吻合症候群)

浜の町病院整形外科

森 久 喜八郎・野 口 康 男
柴 田 玄 彦・元 豊 彦
原 正 文

Hyperostomy Syndrome

—a Case Report—

by

K. Morihisa, Y. Noguchi, H. Shibata,
T. Hajime and M. Hara

Department of Orthopedic Surgery, Hamanomachi
General Hospital, Fukuoka

Hyperostomy syndrome have been first described by Pratesi in 1957 as an arterio-venular disease that simulates an ischemic arterial disease, but without evident signs of occlusive arterial disease. Malan, Mayall and other authors have also presented this syndrome.

Two clinical pattern has been described;

- Primary : of unknown origin
- Secondary: appearing together with the some organic disease of arteries, veins and lymphatic vessels

A forty-four years old man was examined at our clinic with the complaint of swelling of his right leg. Circumferences of his legs were 38.5 centimeters on the right and 35.0 centimeters on the left. The arteriogram of his right leg revealed as follows;

- Delayed filling of contrast medium to the posterial tibial artery, anterior tibial artery and fibular artery.
- Many abnormal branches derived from main arteries of his right leg.

He was diagnosed as primary hyperostomy syndrome.

He have been treated with wearing elastic stocking. Difference of the circumferences between his both legs decreased to 1.5 centimeters and he has no complaint on his right leg.

Hyperostomy Syndrome 多吻合症候群は、1957年 Pratesi が最初に報告し、その後 Malan, Mayall 等により報告され、明らかな閉塞性の動脈病変を有する事なく、乏血性の動脈疾患を思わせる動静脈疾患として記載されている。最近では、この症候群は拡大解釈され、静脈・リンパ管の或る種の器質的病変に続発するものも認められている。この様な症候群の一症例を経験したので報告する。

症 例

44才男子 昭和55年4月頃より何ら誘因なく右下腿の腫脹を来す様になった。腫脹は、朝は軽度で、夕方、特に激しい労働後に著明となった。疼痛は、殆んどなかった。昭和55年7月下旬に当科受診。既往症、家族歴に特記すべき事はない。来院時所見は、視診上下腿腫脹を認める以外特に所見はなく、下腿周径

は、右側 38.5 cm 左側 35.0 cm で、3.5 cm の腫脹を認めた。大腿周径は左右差を認めなかった。大腿動脈、膝窩動脈、足背動脈の拍動は、左右差なく緊張も十分であった。一般臨床検査でも異常は認められなかった。右下肢静脈造影を行ったが、血栓を思わせる所見や、静脈瘤も認めなかった。右下肢動脈造影では、大腿動脈、膝窩動脈、前脛骨動脈、後脛骨動脈、腓骨動脈の何れにも、本幹そのものには、閉塞・狭窄等の異常所見は、認められなかったが、下腿主幹動脈末梢部への造影剤の流入は遅延し、正常動脈造影で、足部動脈が造影される時間を経過しても、下腿中央部迄しか造影剤の流入が認められなかった。また下腿では、主幹動脈よりの分枝の数が多く、分枝形態も正常とは

異なり本幹よりほぼ垂直に近い角度で分枝している(図1)。更に細動脈の周囲には、しみ様のぼやけた部が認められるが、これは、毛細管領域における動脈短絡を示す所見と思われる。

以上の如き所見より、この症例を、Hyperostomy syndrome 多吻合症候群と診断し、治療として、弾性ストッキングを装着させた。これにより下腿腫脹は、労働後の夕方になっても著明とはならず、下腿周径差も 1.5 cm~2.0 cm 程度に減少した。薬剤の投与は行っていない。その後約1年の経過をみるが、患者も満足し、また増悪の徴候は認められない。

定 義

Hyperostomy Syndrome は、明らかな閉塞性の動脈病変を有する事もなく、乏血性の動脈疾患を思わせる細動脈系の疾患であり、1980 年 Mayall, 森久が日本に始めて紹介した。Hyperostomy Syndrome の日本訳「多吻合症候群」は、森久によるもので、他に適当な訳語があれば、お知らせ願いたい。

臨床的には、次の如く二型がある。

一次性多吻合症候群：原因不明

二次性多吻合症候群：閉塞性動脈硬化症、静脈炎後症候群、重篤なリンパ管を伴った疾患等の動脈・静脈・リンパ管の器質的変化を同時にもったもの。

原 因

若い女性におけるこの症候群の最も多い原因は、避妊薬ピルの長期使用である。一般的原因としては、下肢外傷、長期にわたる重篤な慢性の静脈不全、激しいスポーツ、強いリンパ管を併発した静脈血栓症候群、及び一次性、二次性のリンパ浮腫である。

症 候

疼痛は動脈性の間歇性跛行に似ているが、患者が歩行を止めても完全には治らず、疼痛をとるには、下肢を挙げ、下腿筋をマッサージする必要がある。多くの患者が歩行中や、起立位を余儀なくさせられた場合に、倦怠感を訴える。下腿の Hyperostomy が認められる部分の静脈では、 PO_2 が高くなっている。末梢動脈の脈拍は触れるが、健側に比しその脈拍に差を認める。下腿の軽度の浮腫・体積増加も認められる。一般には、愁訴が多い割には、他覚的所見に乏しい。

図1 右下肢動脈造影後脛骨動脈より直角に分枝する異常枝を認める。前脛動脈・腓骨動脈への造影剤流入の遅延を認める。

鑑別診断

先天性動静脈瘻，軟部腫瘍等があるが，病歴，動脈，静脈造影像等により鑑別し得る。

動脈造影所見

これは，この症候群を検診する最も重要なものである。主幹動脈末梢への造影剤の流入が遅延する。これは，透視下に観察すると，明瞭であり，特に後脛骨動脈への遅延が目立つ。細動脈領域では，分枝の数が多く，また分枝形態も正常とは異なり本幹よりほぼ垂直に近い角度で分枝している。更に動脈末梢部では細い動脈の周囲に，しみ様のぼやけた部が見られる。これは毛細血管領域のグロムス等の動静脈吻合における動静脈短絡を示すと思われる。この為，中枢側において静脈への血液の還流が早期におこり，所謂 Steal Syndrome と同様となり，主幹動脈末梢への血流が遅延すると考えられている。

※原因・症候等は，脈管学 Vol. 20. 173～176, 1980年に詳しく述べているので参照されたい。

多吻合症候群は，毛細管領域のグロムス等の動静脈吻合における動静脈短絡の増加のため，その部の皮膚温上昇や腫脹をおこし，一方でその末梢部は虚血状態となり疼痛・倦怠感等を生ずると考えられる。

以上，我々は，一次性多吻合症候群 (Hyperostomy Syndrome) と思われる症例を経験したので，その症候群の概要とこの症例の所見について報告した。

参考文献

- 1) Amir Jahed, A. K.: Angiodyskinesia. Progress on Angiology, Proceedings of the VIII International Congress of Angiology. Vol. 1: 75-80, 1975.
- 2) De Bakey, M. E., Burch, G., Ray, T.,

Ochsner, A.: The Borrowing-Lending Hemodynamic Phenomenon (Hemometakinesis) and the Therapeutic Application in Peripheral Vascular Disturbances. Ann. Surgery, 120: 850, 1947.

- 3) Haimovici, H., Steinman, C., Caplan, L. H.: Angiographic Evaluation of Arteriovenous Shunting in Peripheral Vascular Diseases. Radiology, Vol. 87: 696-704, October 1966.
- 4) Malan, E.: Vascular Malformations (Angiodysplasias) Carlo Erba Foundation, Milan, 1974.
- 5) Mayall, R. C.: Arterio-Venular Shunts. Clinical and Surgical Aspects; Hyperostomy Syndromes, J. Cardiovas. Surg. Special Issue Devoted to the VII Congress of the Int. Cardiovasc. Society. Ed. Minerva Med., 241-245, Torino, Italy, 16-18, September 1965.
- 6) Mayall, R. C.: Síndrome de Hiperostomia. Contribuição ao seu Estudo Clínico e Radiológico, Rio de Janeiro, Est. Graf. Villani Filhos Ltda. 1976.
- 7) Mayall, R. C., Morihisa, K., Mayall, A. C. D. G., Mayall, J. C., Brândao, A. T. and Duarte, C. M.: Hyperostomy Syndrome of the Legs—Long Term Results of Surgical and Medical Treatment—, 脈管学 Vol. 20 No. 3: 173～176, 1980.
- 8) Pratesi, F., Nuti, A., Sciagra, A. and Becuci, V.: Due Nuove Sindrome Vascolari da Hiperostomia Arteriovenosa Della Coscia. Acad. Medico Fisica Fiorentina. Apr. 18, 1957.

質問 福岡大学整形外科 諫山 照刀

診断は最終的には動脈造影で決定されると思いますが，外来時の診断の point 次に，動静脈瘻との相違。この二点につき，お教えてください。