手関節部に生じた A-V Malformation の

1 症例

九州労災病院 整形外科

増 田 頼 昭・加 茂 洋 志

徳 久 銀一郎・上 田 恵 亮

帖 佐 博 文・佐々木 賀 一

野 村 茂 治

A Case of Arterio-Venous Malformation in Palmar Wrist Joint Region

by

Yoriaki Masuda, Yoshi Kamo, Ginichiro Tokuhisa,
Yoshiaki Ueda, Hirofumi Chosa, Yoshiichi Sasaki,
and Shigeharu Nomura

Department of Orthopedic Surgery, Kyushu Rosai Hospital.

We experienced a case of congenital arterio-venous malformation in a palmar aspect of the wrist joint region. This case rarely had symptoms and the lesion was limited in extent by angiography. We could perform total excision of this lesion for the uncommon malformation of limited extent. Postoperatively this lesion has improved without recurrence. Previously published literature about congenital A-V malformation is reviewed.

はじめに

先天性動静脈瘻, いわゆる Congenital A-V malformation は, 胎生期初期において, 毛細血管網が, 動静脈に分化する時期に, なんらかの外因が加わり, 分化が障害されると, 動静脈吻合や原始血管網が残存して生じる。先天性動静脈瘻は, 異常交通が複雑, 多岐にわたり, 血管腫が介在するものが多く, それほど稀な疾患ではない。こゝでは比較的高令者で, 通常みられる臨床症状に之しい Congenital A-V malformation を経験し治療したので, 文献の考察を加えて報告する。

症 例

症例: 45才, 女性, 主婦, 主訴 右手関節掌側部発赤, 皮下出血

既応歴: 手に外傷歴, スポーツ歴なし。

家族歴: 特記すべきことはない。

現病歴: 昭和60年5月5日右手関節掌側部に, 5×5 cm の薄い発赤が出現するも, 翌朝には消退していた。15日に同部に再出現した発赤は消退せず内出血を呈し, 2日後には, 楕円形の暗赤色となった。自覚症状は, 何も訴えなかった。

来院時所見: 右手関節掌側皮線より小指球部に広がる暗赤紫色の皮下出血がみられ, 一部背側に広がっている。中央部には, 軽度隆起した軟らかい腫瘤を触れるが, 拍動や thrill はない。他に圧痛, 局所熱感, 冷感, cyanosis, 潰瘍の部位はない。患側の肥大はみられない。(図1)

検査成績: 血液検査, WBC $4,700$, RBC 405×10^4 , PLT 18.7×10^4 。生化学検査, 異常なし。血沈60分値, 5 CRP (—), 出血時間, 1分30秒, 凝固時間, 9分30秒。心電図は, 正常である。

単純X線に異常所見はみられない。(図2)

外来で, 軟部腫瘍, とくに, PVS を疑い入院の運び

となった。

連続血管造影(図3)の所見は、尺骨動脈は、通常よりも橈側を屈曲蛇行して走行し、手関節を越えた付近から末梢に、fine な novascularity を比較的広範囲に認める。同部から2本の静脈が早期に造影されており、A-V shuntの所見がある。深掌動脈弓から第5指への枝も細く、血流の減少がみられ、A-V shuntにより盗血されている可能性がある。静脈相(図4)では、手関節の尺側に拡張した静脈がみられ、第5指への静脈の逆流がみられる。これも、A-V shuntの影響と考えられます。

cavernous hemangioma に特徴的な pooling 像はなく、capillary hemangioma を伴った A-V fistula と診断された。

図1 初診時所見

図2 単純X線像

図3 血管造影動脈相

図4 血管造影静脈相

図5 術中所見

図6 病理組織像

図7 手術後5カ月の所見

図8 手術後5カ月の血管造影

入院中、同部に、皮下出血をくり返したので、病態の把握の上に、病巣の摘出術を行った。術中所見(図5)は、皮膚とびまん性に癒着していた海線状の皮下組織内に、尺骨動静脈が、密接にくっついていて、分離不可能な状態にあった。四方結紮し、尺骨動静脈を含んだ病巣を、一塊として摘出した。

病理組織(図6)では、脂肪組織、腱膜と伴に細動脈が多く含まれ、細静脈には、拡張、分岐、再疎通像がみられ、A-V malformationと診断された。

術後5ヶ月の外見(図7)は、皮切にそって一部、ケロイド様硬化がみられるのみで、病巣摘出部より末梢の冷感、しびれ感等の虚血症状はなく、再出血はみられていない。

血管造影(図8)では、順向性に肘部より造影したために尺骨動脈は描出されていないが、橈骨動脈から多くの細い側副血行路が、病巣摘出部、それより末梢部に走っている。

考 察

Congenital A-V malformation は、1859年 Letenne-

ur³ によって最初に報告され、1953年 Curtis¹ 等によって外科的検討が加えられた。

診断には、臨床症状と、連続血管造影、皮膚測定、静脈血 O₂ 濃度などの検査が必要とされるが、連続血管造影が決め手となる。Curtis¹、Griffin² 等の症例では、ほぼ全例に、疼痛、腫脹がみられ、多くに thrill が存在するし、薄井⁸ 等の症例では、全例骨浸蝕像がみとめられるも、我々の症例では、臨床症状に乏しく皮下出血と出血による軽度の腫脹のみであり又、骨病変も見られなかった。血管造影により診断が確定した。Mallan & Puglionisi 分類^{4, 6, 7} (表 1) によれば、我々の症例の病態は、本幹型動静脈瘻の限局型、低活動型である。治療は、一定の症状が現われるまで出来る限り保存的に経過をみるのが原則であり、手術適応は、表 2⁷ の通りである。手術法は、複雑な病態に応じて各種の方法が考案されているが、術後、末梢虚血が生じ易く、再発、増悪が多く、難治性で切断例も多い。我々の症例では、尺骨動静脈に生じた限局型であったために、完全に摘出され、予後も良好な経過を取っているのであろう。今後の慎重な経過観察が必要と思われる。

結 語

我々は今回、手において通常の臨床症状に乏しい A-V malformation の 1 例を経験したので報告した。

参 考 文 献

- 1) Curtis, R. M.: J. Bone Joint Surg. 35-A : 917, 1975.
- 2) Griffin, J. M et al : Plast. Reconstr. Surg. 62 : 49, 1978.
- 3) Letenneur : Ftat cirsoide des arteres de lavnt-bras, complique de phlebectasic arterielle. Gaz. d. Hop., 32 : 122, 1859.
- 4) Malan E & Puglionisi A: Congenitol angiodysplasias of the extremities, Note 2. J. Cardiovascular Surg. 6 : 255, 1965.

表 1 代表的分類法

Malan & Puglionisi (1964)

1. 本幹型動静脈瘻
(truncular a-v. fistulae)
広範型、限局型、活動型、低活動型
2. 動静脈瘻型血管腫
(a-v. angiomas)
単口型、複口型、広範型、活動型、低活動型

表 2 手術適応となる病態

- 1) 局所循環障害による出血、難治性、潰瘍形成
- 2) 静脈循環不全によるうっ滞
- 3) 神経圧迫や荷重負荷による疼痛
- 4) 過成長や軟部組織の腫脹、肥大による変形
- 5) 末梢虚血症状
- 6) 細菌性動脈内膜炎、心内膜炎、敗血症など感染併発

- 5) Szilagyi, D. E., Elliott J. P., DeRusso, F. J.: Peri pheral congenital arteriovenous fistulas. Surg. 6 : 255, 1965.
- 6) 田辺達三：動静脈瘻に対する各種手術術式。手術31 : 7, 1977.
- 7) 田辺達三：先天性動静脈瘻。外科, 40 : 1291, 1978.
- 8) 薄井正道：上肢における先天性動静脈瘻の治療経験。整形外科, 31 : 11, 1980.

質 問

福岡大学 高岸 直人

手術前後に指の長さとか、萎縮像が見られなかったか？

解 答

九州労災病院 増田 頼昭

術前、術後の単純 X 線にても、骨浸蝕像などの骨変化はみられず、指の長さに左右差なく、萎縮も現在のところ見られておりません。