悪性腫瘍との鑑別が困難であった 下腿 A-V malformation の 1 例

福岡県立柳川病院整形外科

吉田 健治・中村 博

久留米大学整形外科

小宮 節郎

A-V Malformation in the Lower Leg Suspected of Malignant Tumor : A Case Report

by

Kenji Yoshida and Hiroshi Nakamura

Department of Orthopedic Surgery, Yanagawa Prefectural Hospital

Setsuro Komiya

Department of Orthopedic Surgery, Kurume University School of Medicine

A case of A-V malformation in the lower leg, which had been suspected of malignant tumor because of unusual symptoms, was reported. The patient was a girl aged sixteen with a painful lump in her calf.

The characteristic clinical features of A-V malformation such as gigantism of the limb, skin ulceration, dilated varicose veins and cardiac failures were not revealed.

Surgical excision of the angiomatous tissue, which existed in the soleus muscle, was carried out. Histological diagnosis of the excised tissue was A-V malformation.

Because of localized type, satisfactory surgical result was obtained.

はじめに

先天性動静脈瘻は一種の血管奇形であり、いわゆる A-V malformation とよばれる。脳、肺、四肢、躯幹に認められる末梢性の A-V malformation は比較的まれな疾患である。今回、私達は下腿ヒラメ筋内に発生した A-V malformation の 1 例を経験したので報告する。

症 例

症例：16 才，女子，高校生。

主訴：左下腿の疼痛，腫瘤。

現病歴：昭和 59 年 11 月，左下腿後面の腫瘤を触れるのに気づいたが疼痛がなかったため放置していた。2～3 カ月前より疼痛が出現したため，昭和 60 年 5 月 1 日，当科を受診した。

既往歴：昭和 59 年 10 月，follicular adenoma の診断で甲状腺部分切除を受けた。

家族歴：特記すべきことはない。

現症：体格中等度，発育障害は認められず，両下肢は対称性で大腿および下腿周径も左右差はなく患肢の肥大はなかった。視診上，とくに異常はなく，静脈瘤，母斑，潰瘍，拍動などは認められなかった。下腿後面中央部に，わずかに thrill を触れ，深部にピンポン玉大の弾力性のある腫瘤を触知し圧痛があり，同部で血管雑音が聴取された。

検査所見：一般検査，検尿，血沈，血液生化学的検査，電解質，胸写，下腿の骨写，心電図ではとくに異常を認めなかった。両下腿の CT では左下腿三頭筋の部に low ないし isodensity の massive shadow を認め，enhance により増強される部分があり，血管性病変が示唆された。Tc-MDP scintigram では，左下腿中

中央部には明らかな集積は見られず、RI angiogram では同部に著明な pooling が見られ血管成分に富んだ病変が考えられた。Ga citrate scintigram では左下腿に淡い集積を認めるのみで他臓器には異常所見は見られなかった。左大腿動脈からの血管造影では後脛骨動脈の分枝が下腿中央部で異常に拡張、蛇行し、新生血管の増生を呈しており、動脈相ですでに静脈が造影され、動静脈短絡の所見が得られ、静脈相では著明に拡張、蛇行した静脈が造影された(図1)。これらの所見より A-V malformation, alveolar soft part sarcoma あるいはその他の悪性腫瘍を考え、needle aspiration biopsy を行ったが腫瘍細胞は証明できなかった。

手術所見：悪性腫瘍を完全には否定できないままに、昭和60年7月15日手術を施行した。下腿後面中央部に軽度に変曲したS状皮切を加えて進入、腓腹筋を外側によけヒラメ筋に達すると、筋肉内に多数の拡張した静脈があり表面から観察された(図2)。流入動脈、流出静脈と思われる血管を結紮し、血管腫様の部分を含む筋肉を一塊として摘出した。腫瘍は $6.0 \times 3.0 \times 1.5$ cm、断面は蜂巣状であり、肉眼的には腫瘍性病変を示唆する所見は見られず駆血帯を free にして止血し創を閉鎖した。術中出血量は299 gであった。

組織学的所見：H. E. 染色標本では、筋内が不規則に断続され、赤血球を充滿した毛細血管の集簇性増殖を認め hemangiomatous な様相を呈し、静脈の増生、血管周囲のリンパ球浸潤像を認め、局所血行動態の異常を示唆していた。また静脈の拡張、蛇行、迂曲も顕著に見られた(図3. a)。Elastica van Gieson 染色標本では、筋肉内に不規則に散在する静脈があり、成

a. 前後像

b. 側面像

図1 血管造影

図2 術中所見

ヒラメ筋の表面に拡張、蛇行した静脈がみられる。

熟した脂肪組織が混在し、動脈も認めることができた(図3. b)。腫瘍細胞は認められず、A-V malformation と診断した。

術後経過：術後、局所の thrill, 血管雑音は消失し、術後3カ月の現在、症状もなく、経過観察中である。

考 察

動静脈瘻という名称は、動静脈瘤、動静脈吻合、動静脈交通、動静脈性静脈瘤、蔓状血管腫などによばれている各種の疾患を総称するものであって、動脈と静脈の間に毛細血管を経ないで直接連結の生じる病的な状態と定義される。本症の成因には先天性のものと後天性のものがあり、前者は一種の血管奇形であり、先天性動静脈瘻、いわゆる A-V malformation とよばれる。A-V malformation をその病態より系統的に分類する試みが、Malan³⁴⁾、濱武²⁾、村上ら⁵⁾によってなされているが、Malan ら³⁴⁾は A-V malformation を血管发育異常の一部と考え、これを本幹型と血管腫型に分けており、私達の症例は血管腫様の異常短絡があったことにより血管腫型に属する。

症状は動静脈瘻の程度により多様であり¹⁾⁸⁾、瘻が細く、または血管腫様部分を通じることで短絡血流量が

a. H. E. 染色：hemangiomatous な様相を呈し、静脈の増生、拡張、蛇行がみられる。

b. Elastica van Gieson 染色：筋肉内に不規則に散在する静脈があり、脂肪組織が混在し動脈も認める。

図3 病理組織像

著しく少ければ無症状で経過する⁷⁾。一般には、静脈瘤、母斑、患肢の肥大、皮膚温の上昇、振戦の触知、血管雑音、潰瘍などがあげられる。ここで関連するものとして、静脈瘤、肢軟部組織と骨の肥大、および母斑を3主徴とする Klippel-Trenaunay 症候群があり、A-V malformation はこれに属することが少ない。また Parkes-Weber 症候群とよばれるものはこの3主徴に加えて動静脈瘻が証明された場合をいう⁵⁾⁸⁾。以上のような臨床症状を呈していれば診断は容易であるが、そうでない場合は血管造影がきわめて有用であるといわれている⁵⁾⁹⁾¹¹⁾。その血管造影所見としては、動静脈間異常交通、動脈および静脈の拡張、蛇行、瘻末梢動脈の造影不全、造影剤の pooling、早期静脈還流などがあげられる。

私達の症例では臨床的には深部の腫瘤に一致して振

戦の触知、血管雑音の聴取が得られたのみで、その他の症状を呈していなかったため悪性腫瘍を否定できず、血管造影を行い前記の所見を得られたが、村上⁵⁾、鷺尾¹¹⁾、榊原⁷⁾らも述べているように悪性腫瘍により動静脈瘻が発生した場合でも同様な所見を呈することがあり、鑑別診断に難渋した。とくに alveolar soft part sarcoma の血管造影所見⁶⁾¹⁰⁾とは非常に類似点が多かった。しかし needle aspiration biopsy で腫瘍細胞が証明されなかったため、悪性腫瘍は否定的になったが、確定診断は組織学的所見により得られた。

治療は動静脈瘻の存在する部位、範囲、異常交通の程度、様式によって異なるが、Malan ら⁴⁾は A-V malformation 43 例の手術について報告し、その目標は正常な血管は残し、動静脈短絡部分とその途中の血管腫様の病変をすべて除去することであると述べている。そのため瘻が限局性のもの、周囲組織をある程度犠牲にできるものは予後が良好であるが、一肢全体に病変が広がったものは根治が不可能である場合が少なくないと言われている。

私達の症例では、ヒラメ筋内に血管腫様の病変を主体とする動静脈瘻が限局して存在していたので、筋肉を含み一塊として摘出可能であったため、予後は良好であると思われる。

ま と め

悪性腫瘍との鑑別が困難であった下腿 A-V malformation の比較的まれな 1 例を報告し、文献的考察を加えた。

文 献

- 1) 福田 保：臨床外科全書。第5巻，心臓・血管外科・金原出版，東京，1968。
- 2) 濱武義征：四肢の先天性血管形成異常 (Angiodysplasia) に関する臨床的研究。福岡医誌，65：833-863，1974。
- 3) Malan, E. et al.: Congenital angiodysplasias of the extremities (Note 1: Generalities and classification; Venous dysplasias). J. Cardiovasc. Surg., 5: 87-130, 1964.
- 4) Malan, E. et al.: Congenital angiodysplasias of the extremities (Note 2: Arterial, arterial and venous, and haemolymphatic dysplasias). J. Cardiovasc. Surg., 6: 255-345, 1965.
- 5) 村上国男：動静脈瘻。外科診療，8：1429-1440，1966。

- 6) 中村和輝・他：Alveolar soft part sarcoma の 1 例。整形外科と災害外科，34：428-430，1985。
- 7) 榊原 仟：外科学。朝倉書店，東京，1977。
- 8) 島田信勝・他：動静脈瘻。診断と治療，57：1139-1144，1969。
- 9) 高雄哲郎・他：先天性動静脈瘻の手術—とくに末梢性動静脈瘻について—。外科，36：721-728，1974。
- 10) 塚本憲甫：骨軟部腫瘍図譜。中山書店，東京，1972。
- 11) 鷺尾正彦・他：四肢動脈瘻の臨床—自験 6 例を中心に—。外科診療，11：954-962，1969。

質 問

福岡大学 葉 山泉

手術の際に駆血帯や止血帯の使用はどのようにされているか。

解 答

県立柳川病院 吉田 健治

空気止血帯を使用して手術を行ったが，ヒラメ筋表面に拡張した静脈は確認された。筋肉を含め一塊として摘出した後に止血帯を除去し止血して創を閉鎖した。