● 症例報告

手背に生じた静脈奇形を伴う静脈性血管瘤の1例

谷島 義章

●要 約：症例は、66歳男性。2年前より手背の血管の腫脹を自覚し、徐々に拡張してきたため、当院外来を受診した。身体所見上、左手背に径30×15 mm程度、平滑・軟の静脈の拡張を認めた。血管超音波では、腫脹した血管の内部に血流を認め、単純CT（Computed Tomography）では、左中手骨間背側皮下に、周囲浸潤性のない平滑、明瞭、均一な腫瘍を認め、手背の静脈性血管瘤と診断した。手術は、静脈性血管瘤に連続する血管を結紮し切離したのち、血管瘤全体を遊離し完全に切除した。病理所見では、静脈奇形が中央の拡張した血管の外膜領域を取り囲んでいた。この病理所見から、弾性板の外側を中心に発生した静脈奇形が形態的に静脈周囲組織の脆弱化をもたらした、静脈性血管瘤が発生したものと考えられた。本症例を通して、血管腫脹の鑑別診断では、静脈性血管瘤には静脈奇形を伴う場合があることを考慮するべきであると考えられた。

●索引用語：静脈性血管瘤、静脈奇形

静脈学2019; 30(1): 33–36

緒 言

手背に発生した静脈性血管瘤は報告例が少なく、また上肢の血管に生じた静脈奇形の報告例もまれである。本症例では、病理検査の結果、手背の静脈性血管瘤の外膜部を取り囲むように静脈奇形が認められた。こうした病理所見はいままで報告例がほとんどないため、考察を含めて報告する。

症 例

症 例：66歳、男性

主 訴：左手背の血管腫脹

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

薬 歴：特記事項なし

現病歴：2年前より手背の血管の腫脹を自覚した。血

管の腫脹が1年間で徐々に拡張してきたため当院を受診した。易出血性や疼痛などの症状は認めなかった。

身体所見：左手背に径30×15 mm程度の、平滑・軟の拡張した静脈を認めた（Fig. 1a）。

血液検査所見：RBC $434 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 13.9 g/dL, Ht 41.5%, PLT $22.1 \times 10^4/\text{mm}^3$, WBC $7890/\text{mm}^3$, AST 24 IU/L, ALT 21 IU/L, BUN 11.9 mg/dL, Cre 0.83 mg/dL, Na 143 mEq/L, K 4.3 mEq/L, Cl 110 mEq/L

画像所見：単純CT（Computed Tomography）にて左3～4中手骨間背側皮下に、周囲浸潤性の変化のない平滑、明瞭、均一な腫瘍を認めた（Fig. 1b, 1c）。

血管超音波所見：静脈性血管瘤から静脈が2本に分岐しており、内部に血流を認めた。

手術所見：局所麻酔下に手術を開始した。血管超音波を用いて静脈性血管瘤に連続する血管を2本同定し、皮膚に1 cm程度ずつ横切開を加え、静脈性血管瘤に連続する血管を結紮し切離した。血管瘤全体は周囲の組織とは癒着を認めずに、容易に剥離し遊離できた。摘出した血管瘤は嚢状に拡大し凹凸のある表面を呈しており、弾性軟の所見を呈していた（Fig. 2）。出血量はごく少量で終了した。

松本協立病院心臓血管外科

受付：2019年3月1日 受理：2019年4月3日

doi: 10.7134/phlebol.19-03

Fig. 1 a) The swollen vein was 3 cm in diameter. b, c) CT showed a smooth, flat, noninvasive mass on the dorsal hand between the 3rd and 4th metacarpals.

病理所見：検体の大きさは22×10 mm大。中央部の拡張した血管は、血管壁に明瞭な内弾性板と外弾性板を欠いており、その一部の内膜は肥厚していた。血管の内腔には赤血球、血漿成分が見られ、静脈性血管瘤と診断した。また、この静脈性血管瘤の外膜領域を取り囲むように、大小の血管増生がみられ、一部で血管腔に乏しく、軽度短紡錘形に腫大した内皮細胞の増生した部分がみられた (**Fig. 3**)。免疫染色ではCD34陽性、Factor-VIII陽性を示しており、外膜領域を取り囲んだ血管増生は静脈奇形と診断した (**Fig. 4**)。

術後経過：術後3年が経過したが、再発を認めずに良好に経過している。

考 察

静脈性血管瘤は、静脈の蛇行や延長を伴わない限局性の拡張性病変と定義される¹⁾。静脈性血管瘤は、varicose veinと異なり比較的稀な疾患であり、とくに上肢の静脈性血管瘤の報告例は少なく¹⁻³⁾、全ての静脈性血管瘤の4.2%である⁴⁾。なかでも手背の発生例は、1983年～2016年12月までの症例報告で確認できたものは本症例を除いて4例にすぎない⁵⁾。

静脈性血管瘤の発生原因についてはいまだ不明であるが、外傷や炎症などの2次性の原因を除外すると、静脈内膜の肥厚や硬化などの静脈壁の脆弱化が推定されており、静脈周囲の支持組織の脆弱化が静脈性血管瘤の発生を助長し、静脈壁に血流や外力が加わることで拡大すると考えられている^{6, 7)}。さらに、本来の静脈壁の構造が保たれないため、血流の乱れや鬱滞が生じ、急速に器質化血栓が形成され拡大する可能性もある⁸⁾。

本症例では、静脈性血管瘤の外膜部を中心に静脈奇形が発生していた。従来、静脈奇形は、海綿状血管腫や筋肉内血管腫などの名称を用いられていた病変であったが、ISSVA (The International Society for Study of Vascular Anomalies) 分類で「血管奇形」として再分類された^{9, 10)}。現時点で上肢の静脈に発生した静脈奇形として報告されている文献は1例のみであり¹¹⁾、静脈奇形と静

Fig. 2 The vessels feeding the venous aneurysm were ligated. The aneurysm was saccular, soft, and irregular in appearance.

Fig. 3 Pathology revealed a 22×10 mm venous aneurysm. Adventitial hyperplasia with swollen endothelium, spindle-shaped elements, and absence of a lumen were observed (*). (EVG, ×12.5).

Fig. 4 Immunostaining revealed venous malformation. a) The venous malformation surrounded the adventitia of a central vessel (*). Immunostaining of the vessel wall was positive for CD34 (black arrows). (Immunostain CD34, ×100). b) Immunostaining of the vessel wall was positive for Factor VIII (black arrows). (Immunostain Factor VIII, ×200).

脈性血管瘤との関連についての報告例は確認できなかった。本症例での静脈性血管瘤の発生原因については、静脈内膜の一部が肥厚していたことに加えて、弾性板の外

側に発生した静脈奇形によって形態的に静脈周囲組織が脆弱化したことが原因と考えられた。さらに静脈性血管瘤が生じたのが手背であったことから、手の使用という外力が加わり、静脈性血管瘤が拡大したものと考えられた。

静脈奇形は表在性病変では青紫色を示すことが多く、全身のどの部位にも発生しうるが、本症例では静脈性血管瘤の外膜部を中心に発生していた比較的小さな静脈奇形であったため、身体所見での鑑別は困難であった。血液検査では、巨大な静脈奇形の場合に、凝固障害によるフィブリノーゲンの低下や血小板の低下、D-dimerの上昇やFDPの上昇などを示すことがあるが、それ以外の場合には一般的に正常値であることが多い¹⁰⁾。画像検査では超音波検査とMRI (Magnetic Resonance Imaging) が有用であるとされ、超音波検査では病内の性状を確認し、MRIでは病変全体の形態や広がりを確認できるとされている。しかし、本症例では超音波検査でも鑑別を行うことは困難であった。

治療方法については、表在性の静脈性血管瘤では、疼痛などの自覚症状を伴う場合や増大傾向にある場合に治療を検討すべきとされているが¹²⁾、外科的切除や硬化療法などの治療方法について一定の見解はない。しかし、外科的切除については、局所麻酔下での単純切除で血行再建も不要であり、術後の再発例もなく長期予後も良好なことから¹³⁾、本症例でも外科的切除を選択した。一方、静脈奇形の治療では、奇形血管内での凝固因子大量消費がある場合に安易な単純部分切除で大量出血をする可能性もあるため、硬化療法との併用などの複合的治療を検討すべきであると考えられている^{14, 15)}。

本症例を通して、血管の腫脹の鑑別として、静脈奇形を伴う静脈性血管瘤の可能性を考慮に入れて、症例に応じて術前に十分な検査を行い適切な治療方法を選択する必要があると考えられた。

結 語

手背に生じた静脈奇形を伴う静脈性血管瘤の1例を経験した。

利益相反

開示すべき利益相反なし

文 献

- 1) Hayashi S, Hamanaka Y, Sueda T, et al: Primary venous aneurysm-case reports. *Vasc Surg* 1993; **27**: 52-57
- 2) 山田 修, 箕浦俊之, 今村 敦, 他: 右前腕静脈瘤の1例. *日臨外医会誌* 1994; **5**: 1044-1047
- 3) Uematsu M, Okada M: Primary venous aneurysms case reports. *Angiology* 1999; **50**: 239-244
- 4) Katsoulis IE, Jader S, Bradpiece HA: Primary aneurysm of the basilic vein. *Surgeon* 2003; **1**: 299-301
- 5) 西 智史, 野中崇夫, 松本春信, 他: 上肢静脈性血管瘤の1例. *静脈学* 2016; **27**: 361-364
- 6) Schatz IJ, Fine G: Venous aneurysms. *N Engl J Med* 1962; **266**: 1310-1312
- 7) Lev M, Sphir O: Endophlebohypertrophy and phlebosclerosis. II. The external and common iliac veins. *Am J Pathol* 1952; **28**: 401-411
- 8) 谷島義章: 急速に血栓化を生じた前腕静脈性血管瘤の1症例. *静脈学* 2017; **28**: 65-67
- 9) Enjolras O: Classification and management of the various superficial vascular anomalies: Hemangiomas and vascular malformations. *J Dermatol* 1997; **24**: 701-710
- 10) Enjolras O, Wassef M, Chapot R: Color atlas of vascular tumors and vascular malformations. New York, 2007, Cambridge University press, pp1-18
- 11) Jarrett F: Cavernous hemangioma of the cephalic vein. *Cardiovasc Surg* 1993; **1**: 386-388
- 12) Calligaro KD, Ahmad S, Dandora R, et al: Venous aneurysms: surgical indications and review of the literature. *Surgery* 1995; **117**: 1-6
- 13) 植松正久, 岡田昌義: Venous aneurysmの治療経験. *静脈学* 1997; **8**: 243-253
- 14) Domp Martin A, Vikkula M, Boon LM: Venous malformation: update on aetiopathogenesis, diagnosis and management. *Phlebology* 2010; **25**: 224-235
- 15) Marler JJ, Mulliken JB: Current management of hemangiomas and vascular malformations. *Clin Plast Surg* 2005; **32**: 99-116

Abstract

A Case of Cephalic Venous Aneurysm Accompanied by a Venous Malformation

Yoshiaki Yajima

Department of Cardiovascular Surgery, Matsumoto Kyoritsu Hospital

Key words: venous aneurysm, venous malformation

This case is a 66-year-old man. He came to our hospital for main complaint for blood vessel swelling of the left back of hand. He was aware of vasodilatation of the back of hand two years before. In physical views, smooth soft vein expansion of diameter around 30×15 mm on the left back of hand was seen. Ultrasound showed blood flowed in the inside of the swelling blood vessel, and simple CT (Computed tomography) showed a flat, distinctive, and no invasive mass under the back side of skin between the left metacarpal bone, so the clinical diagnosis was cephalic venous aneurysm. In the operation, blood vessels into the venous aneurysm were ligated to be isolated and the venous aneurysm was removed completely. In pathology view, venous malformation was seen to surround around the adventitia site of central dilated blood vessel. This suggested that a venous malformation developing outside of the elastic lamina might lead to weakening of the organized tissue around the vein and development of a venous aneurysm. The differential diagnosis of a swelling blood vessel should include a venous aneurysm accompanied by a venous malformation.

Jpn J Phlebol 2019; **30**(1): 33–36