

1. 小児血管奇形に対する集学的診療とIVRを用いた低侵襲治療

上原秀一郎¹⁾, 大須賀慶悟²⁾, 中畠賢吾¹⁾, 奥山宏臣¹⁾

大阪大学 小児成育外科学¹⁾, 同 放射線医学教室²⁾

Multimodal diagnosis and treatment for vascular anomalies in children and less invasive treatment using IVR technique at the Osaka University Hospital

Shuichiro Uehara¹⁾, Keigo Osuga²⁾, Kengo Nakahata¹⁾, Hiroomi Okuyama¹⁾

Department of Pediatric Surgery¹⁾, Department of Diagnostic and Interventional Radiology²⁾
 Osaka University Graduate School of Medicine

Abstract

Vascular malformations consist of dysplastic vessels with no cellular proliferation. Of those, a multidisciplinary approach is required for optimal patient management. Venous malformations (VMs), one type of low-flow vascular malformation, involve multiple anatomical spaces and encase critical neuromuscular structures, making surgical treatment difficult. Percutaneous sclerotherapy has been suggested as the primary treatment for VMs. We have treated children with VMs treated with direct percutaneous injections of sclerosing agents such as ethanol, polidocanol or ethanolamine oleate. Sclerotherapy was performed in an angiographic suite under general anesthesia. Prior to sclerotherapy, percutaneous phlebography was performed in order to visualize the dynamic situation inside the lesion and the draining flow into the adjacent vascular venous system. Although marked swelling and hematuria were observed immediately after the treatment, these recovered conservatively. Forty-five out of fifty-three patients had remission evaluated by MRI examination and alleviation of their symptoms without major complications. The results of a questionnaire to the patients who received sclerotherapy are also introduced. In conclusion, direct percutaneous injection of sclerosing agents provides a simple, safe and effective treatment for VMs in the subcutaneous lesion.

Keywords : *Vascular anomalies, Interventional radiology, Sclerotherapy, Children*

はじめに

血管奇形は疼痛や機能障害により日常生活の不自由さをもたらすばかりか、長期的には成長障害など小児のQuality of life (以下, QOL) に深刻な影響をもたらす。当院では治療の選択に際して、患児の成長、発達を考慮して外科的切除よりもIVRによる血管内治療を積極的に行ってきた。本

稿ではまず小児血管性病変の問題点を述べ、次に我々が行っている集学的診療と治療の取り組み、そして最後に治療後における患者QOLアンケートの結果について述べる。

小児血管性病変の診療、治療上の問題点と小児外科の役割

小児, 成人問わず, 現在の血管性病変の診療と

Table 1 血管性病変の診療と治療の問題点

- 血管腫と血管奇形が混同されている
- 診療指針・治療法が一般化していない
- 初診科が様々である
- 先天性疾患で治癒は稀である
- 成長に伴う病変の進行
- 整容面、心理面への影響が考慮されていない

治療には様々な問題点が存在すると言わざるを得ない (Table 1)。まず診断については、国際血管腫・血管奇形学会 (International Society for the Study of Vascular Anomalies; ISSVA) 分類¹⁾に基づいて血管性病変を正確に把握されておらず、疾患概念そのものが混同されている。さらに2013年に日本IVR学会が提言した血管腫/血管奇形ガイドライン²⁾はまだ一般化していると言いがたい。よって医療者が共通感覚、共通言語、共通認識で診療していくことが未だに困難である。次に診療窓口の問題がある。つまり患者さんが受診すべき初診科を定めることが難しい。例えば小児であれば小児科、小児外科、整形外科、形成外科、皮膚科などを受診する可能性があり、各科が症例を蓄積し、共通認識で診療指針を考えていくことが困難である。また本疾患群は先天性疾患であり、治癒が稀であるばかりか、成長に伴って病変の進行が見受けられる。よって思春期、青年期に達した患者さんは整容面、心理面での影響に十分な配慮がなされるべきであるが、縦割り診療により考慮されていないのが現状である。

このような観点から我々は大阪大学血管腫・血管奇形カンファレンス (Osaka University Vascular Anomaly Conference; OUVAC) を2007年3月から月例で開催し、放射線科、小児外科、形成外科、整形外科、病理などの関連各科が、紹介された初診や治療中の成人・小児症例を中心に臨床診断、治療方針の確認、病理検討を行っている。このことで関連各科の共通認識の上で診断と治療を行うことが可能となっている。

ただ小児に限定すると、急激な疼痛や腫脹、出血などに初期対応するのは小児外科医、小児科医である。また各種画像検査における造影剤投与の

ためのルートキープ、薬剤の処方なども小児独特の処置であり、小児に対応する診療科の介在が必須となる。さらに小児においては手術、IVR治療などに全身麻酔が必要なことがほとんどであり、当院では小児外科医が周術期管理を行っている。このように当院では小児の血管性病変の診療にあたって小児外科が積極的に関与している。

当院における小児血管性病変

当院では2000年から2009年までに404例の血管性病変の症例を経験し、血管系腫瘍、血管奇形の症例は15歳以下の小児は140例、全体の34%を占めていた。

この15歳以下の小児において、男女比は、男児57例(41%)、女児83例(59%)で女児が多く受診していた。病変別にみると血管性腫瘍よりも圧倒的に血管奇形が多く、なかでも静脈奇形は64%にのぼり、AVMは9%、混合型血管奇形が27%であった。従って静脈奇形は小児血管性病変の中で半数を占めることとなり、臨床上、非常に大きなウエートを占めていることになる。

このような静脈奇形患児の治療方針は症状とリスクによって決定している。すなわち機能障害、疼痛、美容的問題、また増大傾向にあるか、それに対して組織壊死、神経障害、機能障害などの治療による有害事象の発生が危惧されるかにより、弾性ストッキングの使用などによる保存的治療を行うのか、IVRによる硬化療法を行うのか、または積極的に外科手術を行うのかを決定している。しかしどの治療法をとっても完璧な治癒はまれであり、目標は症状の緩和とその安定化にあると言わざるを得ない。

小児静脈奇形に対するIVR治療

血管奇形の中で最多である静脈奇形の小児例に対する治療について、手術は成長障害、機能障害が危惧されるため、まずFirst choiceとしてIVR治療を積極的に行っており、その成果をこれまでも報告してきた³⁾。今回はさらに症例を蓄積し、IVR治療の効果や有害事象、主観的な治療効果の評価として重要な治療後のQOLアンケートの結果についても述べる。

①対象

2006年3月から2013年12月までに当院放射線科と小児外科にて共同でIVR治療を行った頭頸部・四肢・体幹部などの静脈奇形の患児53名(男児18例, 女児35例, 年齢2~17歳(平均9.9歳)を対象とした。

②方法ならびに結果

全身麻酔下経皮的直接穿刺による静脈造影を施

行後, 3%ポリドカノール, オレイン酸モノエタノールアミン, または無水エタノールによる硬化療法を施行した。硬化療法の実際はFig.1に示す。効果判定は1か月後のMRI検査及び主観的評価(外観と症状)により行った。各症例に対する治療セッションは1~12回(平均2.7回)であった。平均入院期間は3~5日(平均4.0日)であり, 治療後の各症例における画像検査もしくは症状の変化では消



Fig. 1 小児頸部静脈奇形に対する透視下硬化療法の実際(7歳女児)

- a: 治療前外観写真: 前頸部と左下顎部に膨隆を認める。
- b: 透視下硬化療法施行中: 病変部を直接穿刺しながら硬化剤を注入する。
- c: 透視下硬化療法施行中: 病変を造影しながら硬化剤を注入することにより, より病変の広がり把握することが可能となる。
- d: エタノール注入後の局所急性腫脹: 頸部に病変のある症例では施行後に腫脹のため気道閉塞になる可能性もある。
- e: 治療2年後(治療4回)の外観写真: 病変部は平坦化し, 患児の満足度も高かった。

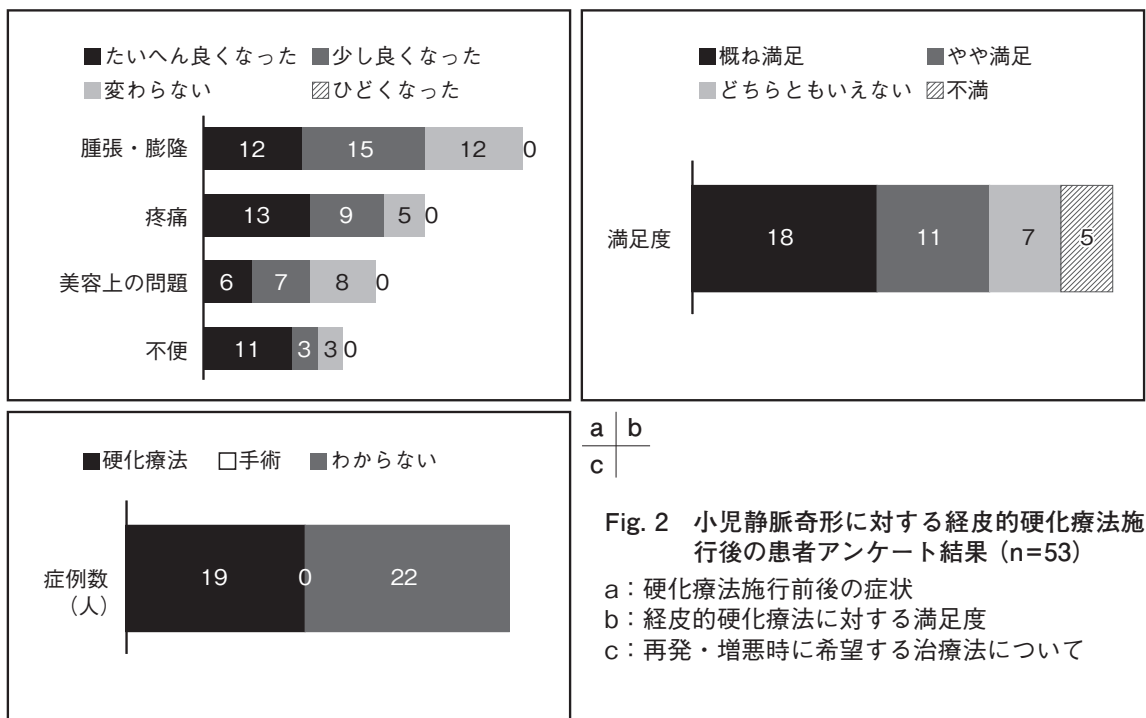


Fig. 2 小児静脈奇形に対する経皮的硬化療法施行後の患者アンケート結果 (n=53)

a: 硬化療法施行前後の症状
b: 経皮的硬化療法に対する満足度
c: 再発・増悪時に希望する治療法について

失または軽快したものが45例で、不変・増悪した症例は8例であった。合併症は治療直後に一過性の血尿1例に認めたのみで、局所的な皮膚壊死や神経障害は認められなかった。術後数日間の局所腫脹や疼痛を訴える症例がほとんどであった。(Fig.1d)

③治療後のQOLアンケート結果

治療による自覚症状の変化を評価するために患者アンケートを行った。アンケートの項目は、①症状の有無(疼痛、腫脹と膨隆、不便さ、美容上の問題)、②症状の改善、③治療に対する満足度、④鎮痛剤使用量の変化、⑤再発・増悪時に希望する治療法とし、53例中41例(77.3%)から回答を得た。

治療前にはほぼ全例に腫脹、膨隆をみると、半数以上が疼痛や整容上の問題があったが、硬化療法施行後に腫脹、膨隆は約7割に症状改善を認めた(Fig. 2a)。また疼痛、不便さに関しても8割は症状改善していた。全体の満足度については、「概ね満足」および「やや満足」は70.7%であった(Fig.2b)。施行前から鎮痛剤を服用していた13例のうち、46.1% (6例)で施行後に使用量が減少した。硬化療法を希望する割合は46.3% (19例)

であり、手術を希望する回答はなかった(Fig.2c)。

まとめ

血管奇形は種々の部位に発生し、様々な病態をとることから小児外科、放射線科、形成外科、整形外科、耳鼻咽喉科などの各科が集まってカンファレンスを行って診断、治療に当たっており、血管奇形の診療はまさにチームワークの医療である。また小児血管奇形の治療におけるIVRによる治療により低侵襲で整容性に優れた効果が得られ、さらに患者満足度も高かった。

●文献

- 1) Abernethy LJ: Classification and imaging of vascular malformations in children. European radiology 2003; 13: 2483-2497.
- 2) 血管腫・血管奇形診療ガイドライン作成委員会. 血管腫・血管奇形診療ガイドライン. http://www.jsivr.jp/guideline/vascular_2013/vascular_2013pdf. 2013.
- 3) Uehara S, Osuga K, Yoneda A, et al: Intralesional sclerotherapy for subcutaneous venous malformations in children. Pediatric surgery international 2009; 25: 709-713.