

## 示指先天性動静脈奇形の一手術例

古屋 隆俊<sup>1</sup> 中澤 達<sup>2</sup>

**要 旨**：症例は38歳の女性。20歳代より左示指・中指の腫脹を自覚していたが、外傷を機に示指末節に潰瘍を形成。血管造影で診断した先天性左示指動静脈奇形に対し、2回の流入動脈結紮術と続く病巣部切除で示指末節部脱落のみで治癒、術後8年経過している。塞栓術は橈骨動脈閉塞にて困難かつ指切断リスクを伴う。流入動脈結紮術は単独では不十分な治療だが、動静脈奇形部切除時の出血量を減らす効果があり、初回手術として有用であった。(J Jpn Coll Angiol, 2009, 49: 430-433)

**Key words**: congenital arteriovenous malformation, digital artery, staged operation

## はじめに

手指の先天性動静脈奇形(arteriovenous malformation: AVM)は稀な疾患であり、根治性を追求すると手指切断となるため治療に難渋する例が多い。われわれは3回の段階的手術により満足のいく結果が得られた症例を経験したので報告する。

## 症 例

患者：38歳，女性。

現病歴：20歳の頃より左示指の腫脹と静脈怒張を自覚。2000年8月，左示指末節の外傷後，創治癒が遅延した。近医でAVMと診断され，複数の大学の形成外科・整形外科・心臓血管外科で指切断が必要と言われ，2001年1月11日当院を初診。左示指・中指に拍動を伴う腫脹とthrillを認め，示指末節は萎縮して潰瘍とチアノーゼを呈し，手背に静脈怒張を認めた(Fig. 1A, B)が，その他の部位には血管異常は認められなかった。

IA-DSA所見(Fig. 1C, D)：橈骨動脈は手根骨部で閉塞し，左示指基節・中節部と中指基節部にAVMを認めた。

経過：先天性手指AVMによる示指末節の創傷治癒不全と診断し，指動脈塞栓術は手指壊死の恐れがあるた

め，血流減少を目的として2月28日，初回手術(AVMの流入動脈3本を結紮)を施行。その後左示指の拍動は消失，静脈怒張は改善し潰瘍は治癒したが，やがて背側に太い拍動血管が出現したため，6月1日，2回目の手術(示指手背静脈切除)を施行。

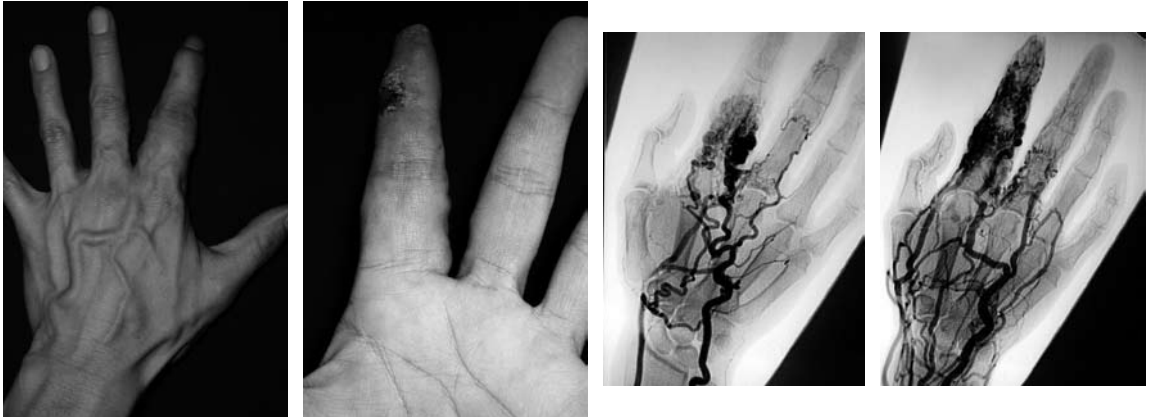
同年9月潰瘍は再燃，左示指の腫脹は悪化し，IA-DSAで新たに示指への側副路の発達が見られた。AVM病巣の切除を要すと判断，指切断の可能性を納得してもらい，9月28日，3回目の手術(左示指基節部のAVM切除：手術時間238分，出血70ml)を施行(Fig. 2A-C)。病理では不均一な内膜肥厚と線維化，中膜平滑筋の肥大，弾性板の途絶など同一血管に動静脈要素が混在し，AVMと診断した(Fig. 2D, E)。

術後左示指は腫脹し，創が哆開したためテフロンフェルトとePTEFE糸による創再縫合を行い，感染や末節の虚血で治療に難渋した。その後もびらん部より出血を繰り返したため，硫酸フラジオマイシンメッシュ(商品名：ソフラチュール)と弾性包帯(商品名：ハイスパン)による圧迫療法を継続した。2001年11月23日，自宅で示指末節が自然脱落したが，その後も続けた圧迫療法が奏効し，2003年12月頃に示指は治癒した(Fig. 3)。現在術後8年経過し，日常生活に支障なく，左中指基節部の軽度腫脹は経過観察中である。

<sup>1</sup>旭中央病院外科

<sup>2</sup>東京都健康長寿医療センター外科

2009年2月2日受付 2009年6月4日受理



**Figure 1** Preoperative view of the left hand and IA-DSA findings.

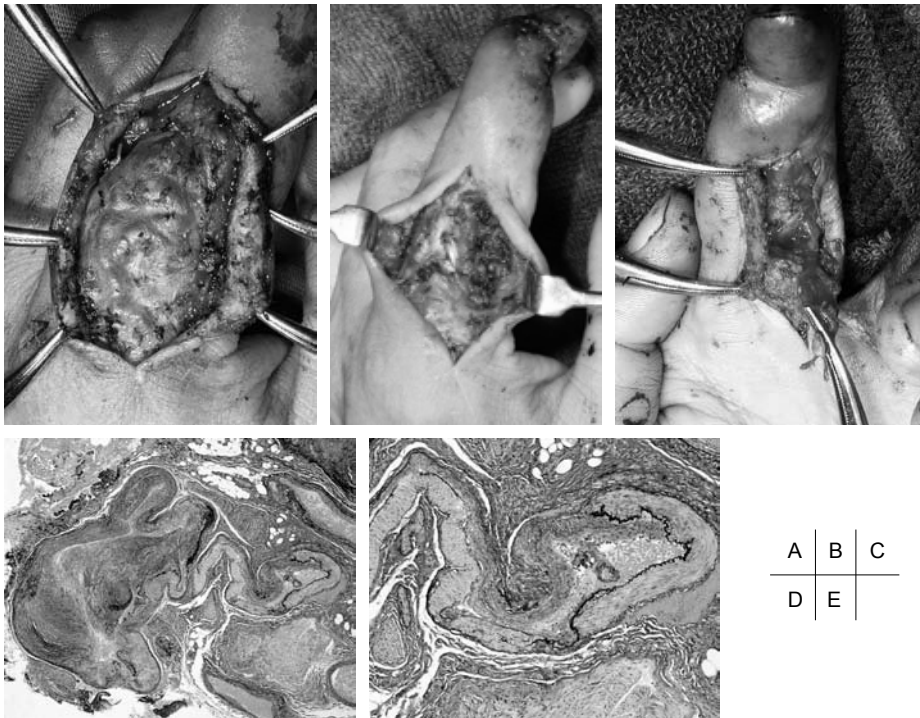
A: Pulsating soft mass at the base of the index finger and vein enlargement on the dorsum of the left hand.

B: Intractable ulcer at the index finger tip.

C: Arterial phase shows the radial artery occlusion and dilated digital arteries of the index and middle fingers, forming massive arteriovenous fistulas.

D: Venous phase.

A	B	C	D
---	---	---	---



**Figure 2** Intraoperative views and pathological findings in elastica van-Gieson stain.

A, B: Dorsal AVM of the index finger, exposed and resected.

C: Palmar view of the index finger, with the palmar AVM being resected.

D: Dilated varices and phlebosclerotic vessels showing heterogeneity in the thickness of the intima and the smooth muscle media.

E: Abrupt disruption of elastic membrane and thickness irregularity of the media.

Both arterial and venous factors exist in the same vessel, which is characteristic of AVM.

AVM: arteriovenous malformation.

A	B	C
D	E	



**Figure 3** Palmar and dorsal view of the left hand, 4 years and 4 months after the last AVM resection. Loss of the distal phalanx gives her no impairment in ADL. ADL: activities of daily living.

## 考 案

先天性AVMは“原始動脈システムの変則的発達”で胎性のさまざまな段階で生じる発育障害や退縮不全により、限局性～びまん性、中枢性～末梢性、大血管～末梢血管、高流量～低流量などさまざまなスペクトルが存在する<sup>1)</sup>。通常出生時に存在するがシャント量が増えて症状を呈するのは数年～数十年後となる。Schwartzら<sup>2)</sup>によると先天性AVMは下肢が最も多く(62%)、次いで上肢(22%)、頭頸部、骨盤部であり、手部は全体の8%であった。

上肢AVMの形態学的分類としてYoungら<sup>3)</sup>、Upton<sup>4)</sup>らの報告があるが、Hill<sup>5)</sup>らはびまん性は罹患部位の全組織が巻き込まれ、完全除去には切断を要すと報告した。本邦では手部AVMは整形外科や形成外科の報告が多く、塞栓術<sup>6)</sup>、骨切除や骨移植<sup>7)</sup>、顕微鏡下の動静脈移植や筋皮弁移植が有効と報告されている<sup>7,8)</sup>。限局型は予後良好だが、びまん型は再発で複数回の手術<sup>8,9)</sup>や切断を要す困難な症例が多く、若年者に多い疾患ゆえ苦慮する。

Qattanら<sup>10)</sup>は臨床面をA(軽症：軽度疼痛)、B(中等症：中等度疼痛、潰瘍)、C(重症：重度疼痛、壊死+盗流現象、多量出血、神経圧迫、心不全)に、構造面を1(少動静脈瘻)、2(限局性、多動静脈瘻)、3(びまん性、多動静脈瘻)と分類し、Aは保存的、B-1とB-2は手術、B-3は保存的、Cは構造によらず手術という管理法を示し、重症の3例中2例が切断となった。本症例は潰瘍を伴うB-2にて手術を選択した。

本症例は橈骨動脈閉塞のため塞栓術は困難で、終末動脈のAVMのため病巣部切除は指切断の危険が大きく、若い女性にて手術判断に迷った。初回の流入動脈結紮は根治治療ではないが、塞栓術<sup>6)</sup>と同様に病巣部切除時の出血を減らし細かな側副路を形成させ、最小限の指喪失で治癒した。吉井ら<sup>8)</sup>は、先天性動静脈瘻患者10例中、2例に分割手術を行い、患指血行を保つ上で分割手術は有効としている。工藤ら<sup>9)</sup>は5例中、広範囲の1例で主病巣切除前に流入動脈結紮を行ったが、広範囲に対する外科治療は無効でかえって疾病を増悪させることもあるので、分割手術と可能ならばその後の再建を行うべきであるとしている。また弾性包帯<sup>9)</sup>は術後の手指腫脹や出血に有効であった。手術計画において血管造影の読影は重要<sup>6)</sup>で、われわれはIA-DSAを用いたが、今日MRA<sup>11)</sup>は指動脈の描出に優れ、骨との関係も明らかとなり、低侵襲性ゆえ今後は普及すると思われる。

## 結 語

左示指先天性動静脈奇形の一手術例を報告した。流入動脈結紮の後、示指AVMの病巣切除を行って、示指末節を失うだけで良好な結果が得られた。中指基節部にも軽度のAVMがあり、今後も慎重な経過観察が必要である。

本論文の要旨は第49回日本脈管学会、一般演題(2008年10月24日、於東京)で発表した。

文 献

- 1) Gloviczki P and Hollier LH: Arteriovenous fistulas. In: Haimovici H et al, eds. *Vascular Surgery*. 3rd ed. California: Appleton and Lange, 1989, 698–716.
- 2) Schwartz RS, Osmundson PJ, Hollier LH: Treatment and prognosis in congenital arteriovenous malformation of the extremity. *Phlebology*, 1986, **1**: 171–180.
- 3) Young AE: Arteriovenous malformations. In: Mulliken JB, Young AE, eds. *Vascular birthmarks: hemangiomas and malformations*. WB Saunders, Philadelphia, 1988, 24–37.
- 4) Upton J, Coombs CJ, Mulliken JB et al: Vascular malformations of the upper limb: a review of 270 patients. *J Hand Surg Am*, 1999, **24**: 1019–1035.
- 5) Hill RA, Pho RW, Kumar VP: Resection of vascular malformations. *J Hand Surg Br*, 1993, **18**: 17–21.
- 6) 藤田忠義, 大慈弥裕之: 特集 血管—その病変と治療—手のAVF, AVMの治療. *PEPARS*, 2006, **9**: 29–34.
- 7) 飯田 裕, 足立善博, 小田順司 他: 手の先天性動静脈瘻に対しfree peroneal flap transferを用いて修復した 1 例. *整形外科*, 1992, **43**: 967–970.
- 8) 吉井 尚, 玉井 進, 福居顕宏: 上肢の先天性動静脈瘻並びに血管腫治療におけるMicrosurgical Approach. *日本手の外科学会雑誌*, 1985, **2**: 736–741.
- 9) 工藤浩一, 千田 直, 斎藤 満他: 上肢先天性動静脈瘻の 5 症例. *東北整形災害外科紀要*, 1988, **32**: 18–22.
- 10) Al-Qattan MM, Murray KA, El-Shayeb A: Arteriovenous vascular malformations confined to the hand: an algorithm of management based on a new classification. *J Hand Surg Br*, 2006, **31**: 266–273.
- 11) Connell DA, Koulouris G, Thorn DA et al: Contrast-enhanced MR angiography of the hand. *Radiographics*, 2002, **22**: 583–599.

## Congenital Arteriovenous Malformation of the Index Finger: A Case Report

Takatoshi Furuya<sup>1</sup> and Tatsu Nakazawa<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Surgery, Asahi General Hospital, Chiba, Japan

<sup>2</sup>Department of Surgery, Tokyo Metropolitan Geriatric Hospital, Tokyo, Japan

Key words: congenital arteriovenous malformation, digital artery, staged operation

A 38-year-old woman with a long history of swelling of the left index and middle fingers, visited our hospital complaining of intractable ulcer of the index finger tip. IA-DSA demonstrated the occluded left radial artery and arteriovenous malformation (AVM) at the base of the two fingers. We resected the AVM from the index finger after ligation of the main three afferent arteries of the AVM beforehand, resulting in minimum loss of the distal phalanx of the index finger without impairment in activities of daily living. The staged operation for digital AVM was effective in reducing operative blood loss, preserving finger function, and avoiding amputation. (J Jpn Coll Angiol, 2009, **49**: 430–433)