

小児前腕筋肉内血管腫の1例

会津中央病院整形外科

古月 顕宗

要旨 筋肉内血管腫は比較的稀な良性腫瘍であるが、診断、治療法についてしばしば難渋する。我々は小児前腕筋肉内血管腫の1例を経験したので報告する。

症例は3歳7か月の女兒、主訴は右前腕遠位部背側の軟部腫瘍で、MRIとエコー所見で筋肉内血管腫と診断、5歳4か月と10歳時に手術を行った。最初の手術では長母指外転筋の全摘と同時に残した腱を短母指伸筋腱に縫合。2回目の手術では長母指伸筋、総指伸筋、固有示指伸筋の全摘と同時に長掌筋腱を長母指伸筋腱、橈側手根屈筋腱を総指伸筋腱への移行術を行った。術後2年、腫瘍の再発は無く手指の機能は正常であった。

診断は画像診断の進歩、特にMRI、エコー等により正確な診断が可能となっている。

治療はびらん性の場合再発を避けるため筋肉の全摘が考えられるが、部位によって機能障害が生じる。我々は筋の全摘と同時に腱移行術を行い、良い結果が得られた。

はじめに

筋肉内血管腫は比較的稀な良性腫瘍であるが他の軟部病変との鑑別がしばしば困難であり、また治療についても問題が見られる。このたび我々は小児における前腕筋肉内血管腫の1例を経験したので診断、特に我々が行った治療法、結果について報告する。

症例

症例 : 3歳7か月、女兒

主訴 : 右前腕遠位部背側の腫脹と疼痛で右上肢を下げると症状が悪化する傾向がみられた。

既往歴、家族歴 : 特記すべきことなし。

治療経過 : 5歳4か月時腫瘍の増大がみられ、超音波検査所見では多房性で内部が低エコーの腫瘍がみられた(図1)。MRI T1強調像では不均一の信号、T2強調像では高信号の腫瘍がみられた。

以上の所見より筋肉内血管腫が考えられ、手術を行った。手術所見は長母指外転筋全体に渡って血管腫の浸潤が見られた。筋肉全体を摘出し、残した腱を短母指伸筋腱に縫合した。病理組織学的所見では海綿状血管腫であった(図2)。ところが10歳時に同側前腕、前に腫瘍があった部位より近位部に同じ症状が出現、血管造影で造影剤の貯留がみられ(図3)、また超音波、MRI検査では前と同じ所見がみられ、2度目の手術を行った。術中所見では長母指伸筋、総指伸筋、示指固有伸筋広範囲にわたり血管腫の浸潤がみられた。腱部分を残り、腫瘍を含めこれら筋肉全体を摘出し、同時に長母指伸筋腱は長掌筋、総指伸筋腱は橈側手根屈筋による腱移行術を行った。病理組織学的所見では同じく海綿状血管腫であった。

結果

2回目の手術後2年の所見では母指を含めて手

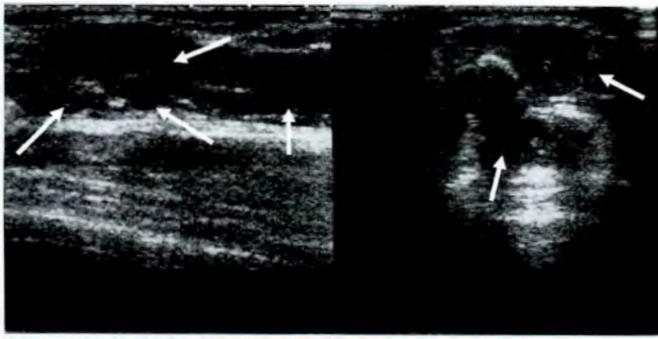


図 1. 超音波所見
多房性で内部が低エコーの腫瘍がみられる。



図 2. 病理組織学的所見
海綿状に拡張した大小不同の血管の増殖がみられる。



図 3. 血管造影所見
造影剤の貯留がみられる。

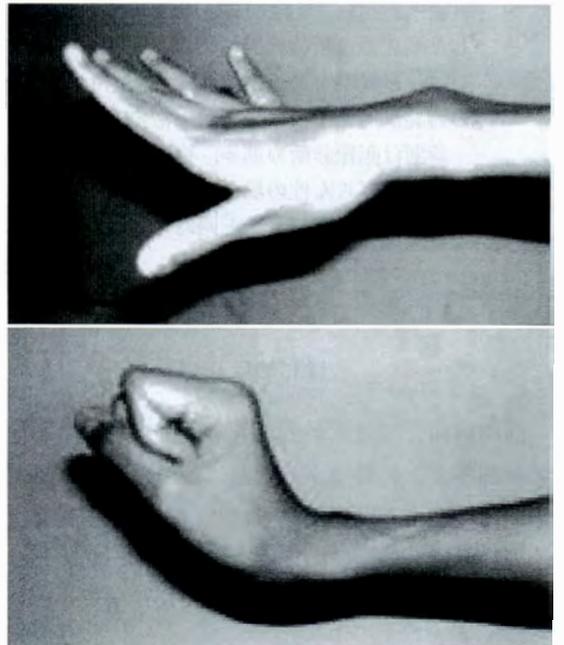


図 4. 術後2年の所見
手指の動きは正常

指の伸展，屈曲は正常，握力も健側と同程度あった。また腫瘍の再発もみられなかった(図4)。

考 察

筋肉内血管腫は1843年Listonにより最初に報告されている。本邦においては1900年松岡の報告が最初である。筋肉内血管腫の発生頻度は1940年Watsonら⁸⁾の報告では全血管腫のわずか0.8%と非常に稀と思われていたが、その後、1993年谷川ら⁵⁾の30%、1994年三浦ら⁷⁾の25%との報告が見られ、それほど稀な疾患ではないと思われる。

症状については主に疼痛と腫脹であり機能障害は主に腫瘍が下腿に生じた時にみられる。臨床症

状についてはShallowら⁴⁾の報告によると、355例中疼痛は69%、腫脹は98%、機能障害は25%の例に、また井上ら¹⁾の報告では19例中、疼痛が95%、腫脹が90%、機能障害が10%の例にみられた。

診断について最も大事なのは本疾患についての認識であるといわれている。臨床症状はおもに疼痛、腫脹で患肢を下垂すると悪化する傾向がみられる症例がある。静脈結石については伊原ら²⁾は70%、二の宮ら⁶⁾は36%の症例にみられたと報告

しているので十分診断の参考になりうる。その他血管造影では造影剤の貯留が見られる。しかし最も頼りになる検査としては超音波とMRIがあげられている。超音波所見では多房性で内部が低エコーの腫瘍が見られる。またMRIではT1強調像では筋肉とほぼ同等かやや高信号、皮下脂肪より低信号と不均一の信号、T2強調像では高信号の腫瘍がみられる。診断率については1944年Shallowら⁴⁾は8~19%との報告であったが、最近では2001年井上ら¹⁾の19例中42%、同じく2001年伊原ら²⁾の7例中43%と向上が見られる。また診断がつかないときは穿刺生検も考慮すべきである。

治療については、日常生活に支障のない例については良性腫瘍であるので経過観察でもよいとの報告がある。伊原ら²⁾は6歳で7年経過で特に問題のない症例を報告している。放射線治療では効果が期待できない。また小児にては骨端線早期閉鎖の危険性がある。塞栓術は血管の同定が困難、compartment syndromeが生じた症例の報告がある。最も確実な方法は手術による摘出術であるが、腫瘍の性質、発生部位、機能障害の発生についての考慮が必要である。局在性の場合では摘出は比較的容易で術後の機能障害の問題もなく、再発の可能性も低いと思われる。Shallow⁴⁾は筋肉内血管腫の68%はびらん性の腫瘍、このタイプであると報告している。この場合腫瘍のみの摘出では18~50%に再発の可能性があるととの報告がある。腫瘍を含めた筋肉の全摘術では部位によって機能障害が生じる。同時に腓移行術による再建術を考慮する必要があるとの報告があるが、実際の

上肢において腓移行術を行った報告は私の調べた範囲では3例のみであった³⁾。我々は1例のみであるが、筋肉の全摘術と同時に腓移行術を行うことで、再発、機能障害なく、良い結果を得ることができた。

まとめ

小児における前腕筋肉内血管腫の1例を経験した。腫瘍を含めた筋肉の全摘術と同時に腓移行術を行うことで、再発もなく機能的障害もなく良い結果が得られた。

文 献

- 1) 井上博子, 伊原公一郎, 後藤能成: 四肢筋肉内血管腫の治療経験. 中国, 四国整形外科学会雑誌 13: 69-73, 2001.
- 2) 伊原公一郎, 木戸健司, 村松慶一ほか: 上肢筋肉内血管腫の治療経験. 日手会誌 17: 515-518, 2001.
- 3) Jones. KG: Cavernous hemangioma of striated muscle. J Bone Joint Surg 35 A: 717-728, 1953.
- 4) Shallow TA: Primary hemangiomatous tumors of skeletal muscle. Ann Surg 119: 700-740, 1944.
- 5) 谷川浩隆, 川口知義, 松本誠一ほか: 血管腫の臨床診断と治療. 整形外科 44: 23-30, 1993.
- 6) 二の宮節夫, 東 博彦: 筋肉内血管腫について. 整形外科 19: 890-898, 1996.
- 7) 三浦修一, 三井宣夫, 宮内義純ほか: 筋肉内血管腫13例の検討. 整形・災害外科 37: 325-330, 1994.
- 8) Watson WL, McCathy WD: Blood and lymph vessel tumors. Surg Gynecol Obstet 71: 569-588, 1940.

Abstract

Intramuscular Hemangioma in the Forearm of a Child : A Case Report

Kenso Kozuki, M. D.

Department of Orthopedic Surgery, Aizu Chuo Hospital

Intramuscular hemangioma is a rare and benign tumor, that is difficult to diagnose and treat. Here we report a case of a 3-year-old girl with an intramuscular hemangioma in the forearm, treated with surgical resection. The patient was 3 years 7 months old presenting a soft palpable mass with pain, in the right distal forearm. Diagnosis was confirmed using MRI and ultrasound findings, and she underwent surgery at 5 years 4 months old and again at 10 years old. In the first surgery, the APR muscle belly was resected en masse since it was diffusely infiltrated by the tumor, and the remnant tendon was transferred to the EPB. In the second surgery, the muscle bellies of the EDCs, EPL, and EIP were resected en masse, and the PL transferred to the remnant tendon of the EPL, while the remnant tendon of the FCR was transferred to the EDCs. At two years postoperatively, the hand function was good, with no evidence of any recurrent tumor in the forearm. Intramuscular hemangioma are more difficult to diagnose than superficial hemangioma. In the present case, the MRI and ultrasound were useful to confirm the diagnosis. In the case of a diffusely invading hemangioma, complete resection of the muscle is indicated followed by reconstruction using tendon transfer, for curative surgery and for preserving the function of the hand.