

第75回道南医学会大会医学研究奨励賞推薦演題

Tufted angioma の1例

函館中央病院 形成外科 ○本 田 進・木 村 中
渡 部 将 伍・山 口 瞳

【要旨】

症例は53歳、男性。4年前より左背部に疼痛と腫脹が出現した。他院で慢性膿皮症と診断され抗菌薬の投与を行ったが改善を認めなかったため当科に紹介となった。初診時、左背部に大きさ11cm×9cmの範囲で点在する茶褐色の色素沈着と膨隆を認めた。全身麻酔下に病変部を切除し、皮膚欠損に対しては分層植皮術を施行した。病理組織像は真皮から皮下にかけて毛細血管が小結節状に分布し大砲の弾丸様 (cannon ball appearance) を呈し、Tufted angioma (房状血管腫) と診断した。Tufted angioma は大半が幼少期に発症し消退することがあるため、増悪傾向がなければ経過観察が必要となる。成人の場合は一般的に経過が長く、痛みが強いまたは症状の改善のない症例には手術治療や放射線治療などを検討するのがよい。

【キーワード】: Tufted angioma, 房状血管腫, cannon ball appearance

【はじめに】

Tufted angioma (房状血管腫) は1976年にWilson-Jones によって報告された比較的稀な血管内皮細胞由来の良性腫瘍である¹⁾。ISSVA分類では、Tufted angioma は乳児血管腫とともに脈管奇形 (vascular anomaly) のうちの良性の血管性腫瘍 (benign vascular tumors) に分類される²⁾。大半の症例は幼少期に発症するが、成人での発症例もみられる。今回われわれは成人のTufted angioma の症例を経験したため報告する。

【症例】

患者: 53歳, 男性

主訴: 背部の疼痛, 腫脹

既往歴: 上室性期外収縮

現病歴: 4年前より左背部に疼痛, 腫脹があり排膿することがあった。慢性膿皮症と診断され他院で抗菌薬含有軟膏の外用と抗菌薬の内服により治療を行っていた。改善がないため当院皮膚科を受診し, 手術治療の適応と判断され当科に紹介となった。

現症: 左背部に11cm×9cmの範囲で軽度の膨隆を認めた(図1a, b)。まだら状に茶褐色の色素沈着を認め, 一部は暗赤色を呈しており圧痛を伴っていた。局面の境界は不明瞭であった。

画像所見: 造影CT検査で皮膚の肥厚とその深部の皮下脂肪層に軽度の濃度上昇を認めた(図2)。

治療経過: 全身麻酔下で病変の切除と分層植皮術を施行した(図3a, b)。肉眼的な辺縁より2~3mmはなし、深部は脂肪織をつけて切除した。大腿部より14/1,000 inch1.5倍網状分層皮膚移植を行った。術後8ヶ月を

経過したが, 再発はなく疼痛も改善し経過は良好である(図4)。

病理組織学的所見: 真皮から皮下にかけて毛細血管が小結節状に分布しており大砲の弾丸様 (cannon ball appearance) を呈していた(図5a, b)。強拡大では腫瘍細胞に異型性の所見は乏しく, 血管内腔には微小な血栓形成も見られた。なお免疫組織化学染色では, 血管内皮マーカーであるERG, CD31, CD34が陽性, リンパ管内皮マーカーであるD2-40では一部陽性であった。Tufted angioma (房状血管腫) と診断された。

【考察】

Tufted angioma は1976年にWilson-Jones によって報告された血管内皮細胞由来の良性腫瘍である¹⁾。これに先立ち本邦では1949年に血管性腫瘍である血管芽細胞腫の報告がある³⁾。Tufted angioma と血管芽細胞腫が同一疾患であるか否か議論があったが, Igarashi による両疾患の比較によると同一疾患であるとの結論に帰着している⁴⁾。しかし一方で病変の深さ, 増殖の様式, 程度の違いにより類縁疾患と位置付けるべきとの報告もある⁵⁾。

大半は幼少期に発症し, 1歳未満での発症例は全体の56%を占める⁶⁾。出生時から存在することも多いため, 乳児血管腫との鑑別にも挙げられる。なお the International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) によって提唱されたISSVA分類では, Tufted angioma は乳児血管腫とともに脈管奇形 (vascular anomaly) のうちの良性の血管性腫瘍 (benign vascular tumors) に分類される²⁾。好発部位は四肢,

体幹が多い傾向にあるが、頭部、顔面、頸部の報告も多い。非常に稀ではあるが頭蓋内の発症例⁷⁾や手指の中節骨内の発症例⁸⁾の報告もある。

いずれも単発性の症例が多い。圧痛や多汗、多毛を呈することがあり、特に圧痛は症例の約9割に見られる。半年から数年かけて緩徐に増大する傾向にあるが、中には自然消退例もある。その約95%は2年以内に消退しているため⁹⁾、生検により診断がなされ且つ症状の増悪がない場合は、発症から1年から2年は自然消退傾向にあるか経過を見てよいと考えられる。なおお訴えた範囲では転移や悪性化の報告はない。

病理組織像は、真皮から皮下組織にかけて類円形から紡錘形の核を有する腫瘍細胞が増殖し、島嶼状、房状に集簇した胞巣が散在する。所謂 cannonball appearance (砲弾様、砲丸様) と称される像を呈する。免疫染色ではCD31, CD34, 第VIII凝固因子関連抗原, D2-40などの陽性により内皮血管細胞への分化が示唆される¹⁰⁾。

鑑別としては乳児血管腫、毛細血管奇形、血管肉腫やカポジ肉腫が挙げられるが、本症例の様な腫脹や排膿といった臨床所見があれば慢性膿皮症も鑑別として考えられ得る。

治療は単発性であるか、またはやや広範囲であっても疼痛などの症状があれば外科的切除が勧められる。切除後の局所再発の報告例があるため十分の経過観察が必要となる。境界が不明瞭であっても外科的切除を選択した場合はある程度のマージンを確保しなければならない。なお幼少期発症であれば自然消退の可能性があるため経過観察が第一選択となる。また放射線治療、レーザー照射、ステロイドの局所投与、インターフェロンの局所投与による治療が選択肢に挙げられる。特に放射線治療については速やかに疼痛が消失し良好な反応が得られるとの報告が多数あるため有用であると考えられる¹¹⁾¹²⁾。病変部が広範囲に及ぶ場合、切除後の拘縮が懸念される場合、整容的に切除が勧められない場合は放射線治療が第一選択と考えても良い。但しこちらも再発例があるため、晩期有害事象の有無も念頭に置きながら照射後の十分な経過観察が必要となる。また乳児血管腫に対しプロプラノロールが「第1選択となる可能性がある薬剤である」として推奨され現在使用されているが、同じβ遮断薬であるチモールマレイン酸の外用剤の使用により Tufted angioma の病変が4ヶ月で完全に消失したとの報告¹³⁾があり低侵襲な治療法として注目される。

総じて消退する症例があるため、特に幼少期発症例は侵襲のある治療を選択することは避けるべきである。初めは対症療法とし経過観察が良いと考えられる。成人で経過が長く、痛みの強い症例や症状の改善のない症例には手術治療や放射線治療を検討するのが良い。

しかしいずれも再発の可能性はあり得る。発症部位や病変の範囲に合わせてどの治療が最善であるか十分に吟味しなければならないと同時に、より侵襲の少ない治療法が今後確立されることが望まれる。

本論文の内容の一部は、第75回道南医学大会(2022年11月26日、於函館)にて発表した。

【文献】

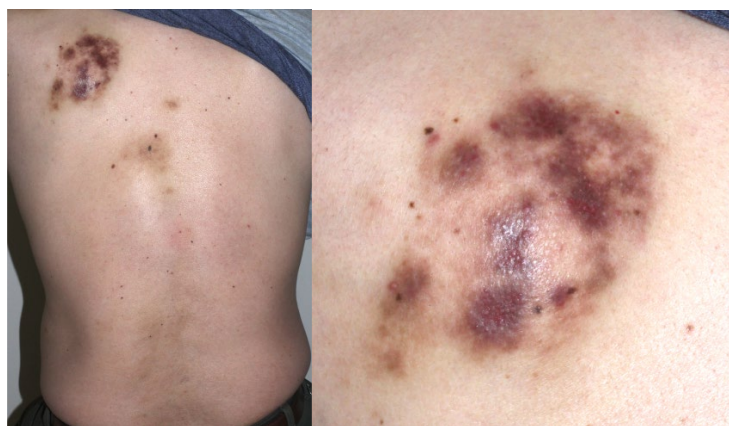
- 1) Wilson-Jonse E. Malignant vascular tumors. Clin Exp Dermatol 1976;1:287-312, 1976.
- 2) 「血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究」班 「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン 2017」(第2版). 2017, <https://www.marianna-u.ac.jp/va/files/vascular%20anomalies%20practice%20guideline%202017.pdf>
- 3) 中川清. 皮膚血管芽細胞腫の1例. 日本皮膚科学会雑誌 1949;59:92-94.
- 4) Igarashi M, Oh-i T, Koga M. The relationship between angioblastoma (Nakagawa) and tufted angioma. Report of four cases with angioblastoma and a literature-based comparison of the two conditions. J Dermatol 2000;27:537-542.
- 5) 古屋佳織, 馬場加那子, 加藤寿香, 他. 成人発症の Tufted angioma. 皮膚病診療 2021;43(4):332-335.
- 6) Okada E, Tamura A, Ishikawa O, et al. Tufted angioma (angioblastoma): case report and review of 41 cases in the Japanese literature. Clinical and Experimental Dermatology 2000;25:627-630.
- 7) Hasegawa T, Arakawa Y, Minamiguchi S, et al. Cerebral Tufted Angioma with Gradually Developing Peritumoral Edema: A Case Report. NMC Case Report Journal 2022;9:187-192.
- 8) Brooke K, Pfister, Erik C, King, Jonathan D, Samet, et al. Tufted Angioma of the Index Finger Middle Phalanx. J Am Acad Orthop Surg Glob Res Rev 2022 Jul 14;6(7). doi:e21.00301.
- 9) 福井奈央, 落合宏司, 森脇真一, 他. Tufted angioma の1例. 臨床皮膚科 2007;61(10):829-831.
- 10) 福永真治. 血管性腫瘍の診断のポイント. 病理と臨床 2012;30(3):293-299.
- 11) 渡邊千夏, 本多教稔, 金澤早織, 他. 成人発症の多発した tufted angioma の1例. 臨床皮膚科 2022;76(2):137-140.
- 12) 松本康夫, 斎藤眞理. 放射線治療が著効した血管

芽細胞腫 (中川) の1例. 日放射線腫瘍学会誌 2004;16:53-57.

Indian Journal of Dermatology 2021;87(4):581-584.

- 13) Biswanath Behera, Raj Remya, Laxmisha Chandra shekar, et al. Tufted angioma successfully treated with topical timolol gel-forming sol

本論文の内容に関する他者との利益相反はない。



a 背部

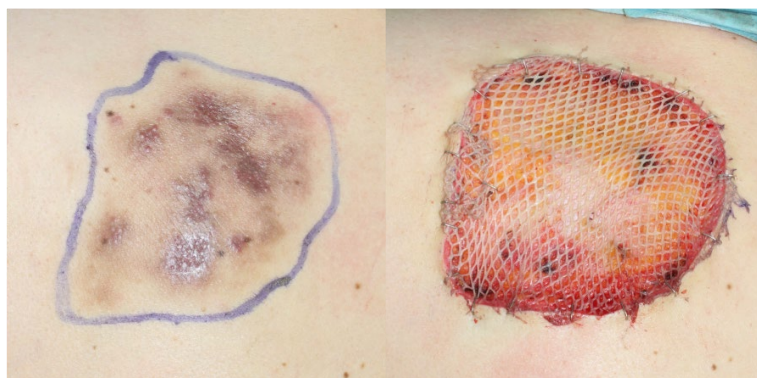
b 病変部の拡大

図1 背部 (初診時)



図2 造影CT画像 (矢状断)

皮膚の肥厚とそれに連続する皮下脂肪層の濃度上昇を認める (矢印)。



a デザイン

b 網状分層皮膚移植後

図3 術中所見

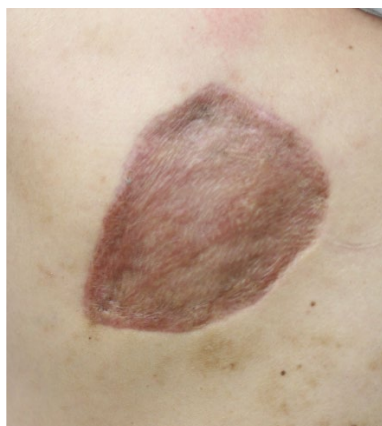
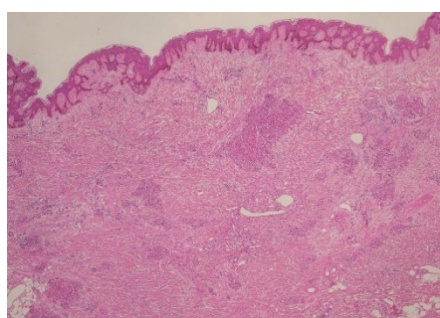
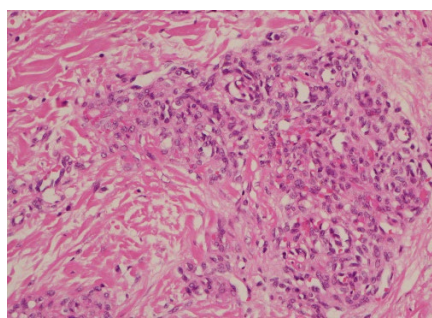


図4 術後8ヶ月



a 弱拡大

真皮から皮下にかけて毛細血管が小結節状に集簇する。



b 強拡大

砲弾様 (cannon ball appearance) を呈する。

図5 病理組織像 (HE 染色)