

滲出性胞状網膜剥離を合併した脈絡膜血管腫に 経瞳孔温熱療法が奏功した 1 例

平形 明人, 岡田アナベルあやめ, 浅川 学, 三井 恭子, 樋田 哲夫

杏林大学医学部眼科学教室

要 約

背 景：脈絡膜血管腫に合併した胞状網膜剥離は難治であり，網膜光凝固，放射線療法，網膜下液排液の成績も安定しているとはいえない．今回，孤立性脈絡膜血管腫に重篤な胞状網膜剥離を合併した症例に硝子体手術，シリコンオイル充填，温熱療法を組み合わせ治療したので報告する．

症 例：29 歳，女性．右眼に黄斑から下耳側に約 8 乳頭径大の脈絡膜血管腫が存在し，徐々に滲出性網膜剥離が進行した．

結 果：網膜光凝固に抵抗し胞状剥離が著明となったため，経強膜網膜下液排液，硝子体手術，網膜光凝固，

シリコンオイル充填術を施行した．網膜はほぼ復位し術後 4 週でシリコンオイルを除去したが，網膜剥離が再発したため 8 週後に経瞳孔温熱療法を追加した．温熱療法施行後 4 週までに，網膜復位を得て腫瘍は縮小し，視力は改善した．

結 論：難治性網膜剥離を伴う脈絡膜血管腫の治療に経瞳孔温熱療法は有用であった．(日眼会誌105：415—420, 2001)

キーワード：脈絡膜血管腫，経瞳孔温熱療法，胞状網膜剥離，硝子体手術，シリコンオイル

A Case of Choroidal Hemangioma with Bullous Exudative Retinal Detachment Treated Successfully by Transpupillary Thermotherapy

Akito Hirakata, Annabelle A Okada, Manabu Asakawa, Kyoko Mitsui and Tetsuo Hida

Department of Ophthalmology, Kyorin University School of Medicine

Abstract

Background : Choroidal hemangioma associated with bullous retinal detachment may be difficult to treat, due to varying results with conventional laser photocoagulation, radiotherapy, or surgical drainage. Here we report on a case of extensive bullous retinal detachment secondary to circumscribed choroidal hemangioma that was resolved after combined treatment with vitrectomy, silicone oil tamponade, and transpupillary thermotherapy.

Case : A 29-year-old woman presented with a large choroidal hemangioma in her right eye associated with serous retinal detachment. The tumor measured 8 disc diameters in size and was located in the inferotemporal macula, abutting the fovea.

Results : Laser photocoagulation of the tumor was unsuccessful in inducing absorption of subretinal fluid. Because of progressive bullous retinal detachment, surgery was performed consisting of external drainage of subretinal fluid, vitrectomy,

endolaser photocoagulation of the tumor, and silicone oil tamponade. The silicone oil was removed four weeks postoperatively at which time almost complete resolution of the retinal detachment was observed. However, retinal detachment recurred eight weeks later, and transpupillary thermotherapy was then applied to the tumor. By four weeks after transpupillary thermotherapy, total reabsorption of subretinal fluid, visual acuity improvement, and decreased height of the choroidal hemangioma were noted.

Conclusion : Transpupillary thermotherapy is an effective treatment for serous retinal detachment associated with choroidal hemangioma. (J Jpn Ophthalmol Soc 105 : 415—420, 2001)

Key words : Choroidal hemangioma, Transpupillary thermotherapy, Bullous retinal detachment, Vitrectomy, Silicone oil

別刷請求先：181-8611 三鷹市新川 6—20—2 杏林大学医学部眼科学教室 平形 明人
(平成 12 年 9 月 19 日受付，平成 12 年 12 月 6 日改訂受理)

Reprint requests to : Akito Hirakata, M. D. Department of Ophthalmology, Kyorin University School of Medicine.
6-20-2 Shinkawa, Mitaka 181-8611, Japan

(Received September 19, 2000 and accepted in revised form December 6, 2000)

I 緒 言

孤立性脈絡膜血管腫は良性血管性過誤腫であるが、しばしば滲出性網膜剝離や黄斑浮腫を合併して視力障害の原因となる^{1)~3)}。滲出性網膜剝離を合併した場合、網膜光凝固や放射線治療が施行されるが難治な症例もあり、複数回の治療で網膜が復位しても視力予後が不良となることも少なくない^{4)~8)}。特に胞状網膜剝離を合併した場合、網膜下液排液や硝子体手術も網膜光凝固に併用される¹⁾⁷⁾⁸⁾が、その予後を検討した報告は少ない。

今回、胞状網膜剝離を合併した脈絡膜血管腫に硝子体手術と経瞳孔温熱療法を組み合わせて網膜復位を得るとともに視力が改善した症例を経験した。脈絡膜血管腫に対する経瞳孔温熱療法の治療応用の報告は極めて少なく^{9)~11)}、本邦では渉猟する限りみられないので、治療経過について報告する。

II 症 例

症 例：29 歳，女性。

初 診：1998 年 7 月 13 日。

主 訴：右眼視野欠損。

現病歴：約 5 年前に右眼視野欠損に気づいたが放置していた。しかし、数か月前から視野欠損が進行したため近医を受診し、精査目的で当科を紹介された。

既往歴：特記すべきものなし。

家族歴：特記すべきものなし。

初診時の視力は右眼 0.7 (1.0 x +1.25 D = cyl -1.25 D Ax 10°)，左眼 0.08 (1.2 x -2.0 D = cyl -0.5 D Ax 35°)。眼圧は右眼 13 mmHg，左眼 14 mmHg。両眼とも前眼部および中間透光体には異常はなかった。眼底検査で右眼中心窩から下耳側に約 8 頭頂径大の境界明瞭な赤橙色の脈絡膜腫瘤とその周囲に漿液性網膜剝離が観察された (図 1)。左眼に異常はなかった。フルオレセイン蛍光造影検査では前動脈相で脈絡膜腫瘤部に斑状の過蛍光が出現し、時間とともに腫瘤全体が染色され、さらに、周辺の網膜下に漏出した。インドシアニングリーン蛍光造影検査では腫瘤部が早期から後期にかけて過蛍光を示した。超音波検査では均一な充実性腫瘤であり、最大厚は 6.2 mm であった (図 2)。磁気共鳴画像 (magnetic resonance imaging, MRI) 撮影で腫瘤は T1 強調画像で硝子体から高信号、T2 強調画像で硝子体と等信号から軽度の低信号を示し、ガドリニウム造影で腫瘤は著明に増強された。頭部のコンピュータ断層 (computed tomography, CT) 撮影および MRI の検査を含む全身検査で異常はなかった。以上の検査結果から、全身異常を伴わない孤立性脈絡膜血管腫と診断した。この時点では視力は軽度に遠視化したものの良好であり、本人も積極的な治療を希望しないため経過観察とした。

しかし、徐々に網膜剝離と黄斑浮腫が進行し矯正視力

は 0.5 p まで低下した。1999 年 6 月 1 日および 6 月 15 日に脈絡膜血管腫の表面に網膜光凝固を施行したが、むしろ滲出性変化が増悪し約 1 か月後には胞状剝離を呈した。さらに、2 か月後には胞状網膜剝離は全剝離に進行し視力は 0.04 に低下した (図 3)。その後も胞状剝離の丈は高くなり水晶体後面に接触し (図 4)、視力は手動弁まで低下した。10 月 21 日に経強膜網膜下液排液、硝子体切除、液空気置換、眼内光凝固、シリコンオイル充填術を施行した。術中、経強膜網膜下液排液時、黄色の粘調な液が茶色の色素塊とともに大量に流出した。しかし、網膜光凝固を施行するためには後極に網膜下液が十分に残存していたため、硝子体手術を追加した。大部分の硝子体皮質は前方に存在し大きな液化腔を有していた。後極から膜状の硝子体皮質が剝離されたが明らかな Weiss 環の出現は得られず、意図的に後部硝子体剝離を完成することはできなかった。医原性裂孔を合併する危険性を極力回避したいために、眼内網膜下液排液のための意図的裂孔は作製せず液空気置換を施行したところ、空気下で網膜がほぼ復位した。そこで、血管腫に眼内光凝固を施行し、シリコンオイルを充填して手術を終了した。術後、網膜はシリコンオイル下で血管腫周辺に僅かに網膜下液がある以外ほぼ復位が得られた (図 5)。網膜光凝固の効果が得られるまで網膜復位を維持させる目的でシリコンオイルタンポナーデを維持した。11 月 2 日には右眼視力は (0.3 x +14.0 D = cyl -1.75 D Ax 10°) まで改善した。約 3 週間後のフルオレセイン蛍光眼底検査でまだ漏出を示す過蛍光がみられたため網膜光凝固を追加し、11 月 25 日にシリコンオイルを抜去した。約 2 か月間は著変はなかったが、その後網膜下液が再び増加しはじめ黄斑浮腫も明瞭になり (図 6)、矯正視力は (0.1 x +1.0 D) に低下した。軽快傾向がみられないため、3 月 8 日にフルオレセイン蛍光造影検査で、最も蛍光漏出が明瞭である腫瘍の中央から下方領域に対して、経瞳孔温熱療法用に調整した半導体レーザー装置を用いて、出力 350 mW，スポットサイズ 3 mm，照射時間 60 秒の条件で 3 スポットの照射を施行した。しかし、その 1 か月後にはさらに網膜下液が増加したため、5 月 31 日に経瞳孔温熱療法を初回より条件を強くし、腫瘍全域を追加照射した。腫瘍全域をカバーするために、それぞれのスポット縁が一部重なるように施行した (800~1,200 mW，3 mm，60 秒，12 スポット)。この際、患者が軽度の眼球深部痛を訴えたため、球後麻酔を使用した。2 週間後には網膜下液の減少が観察され、約 1 か月後には網膜は復位した。8 月 1 日には黄斑浮腫も軽快し、視力は (0.4 x +0.5 D = cyl -0.5 D Ax 20°) に改善した。脈絡膜血管腫は平坦化し、表面は白色瘢痕組織と色素沈着で覆われ (図 7)、網膜の下方周辺部に硬性白斑が散在した。超音波検査で腫瘍の厚みは 4.0 mm に縮小した (図 8)。フルオレセイン蛍光造影検査でも、経瞳孔温熱

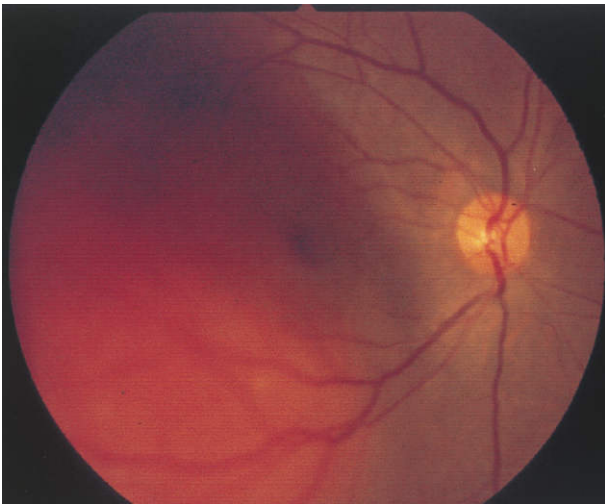


図 1 初診時右眼眼底(1998 年 7 月 13 日).
黄斑から下耳側に約 8 乳頭径大の境界明瞭な赤橙色の脈絡膜腫瘍がみられた。その周囲に漿液性網膜剥離が存在した。

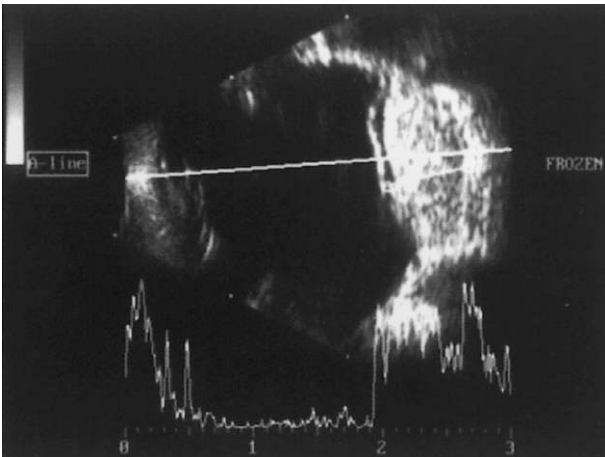


図 2 超音波検査(1998 年 7 月 13 日).
B モードで均一で充実性な腫瘍があり、最大厚が 6.2 mm であった。A モードで腫瘍内も比較的高い反射を呈した。

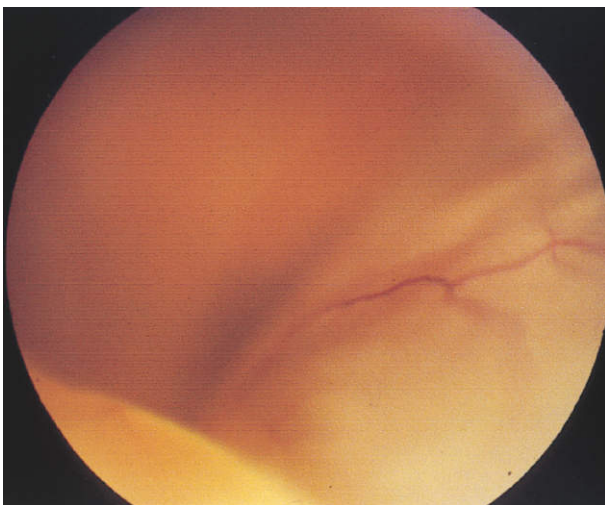


図 3 右眼眼底(1999 年 9 月 6 日).
胞状網膜剥離は腫瘍を覆うように進行した。

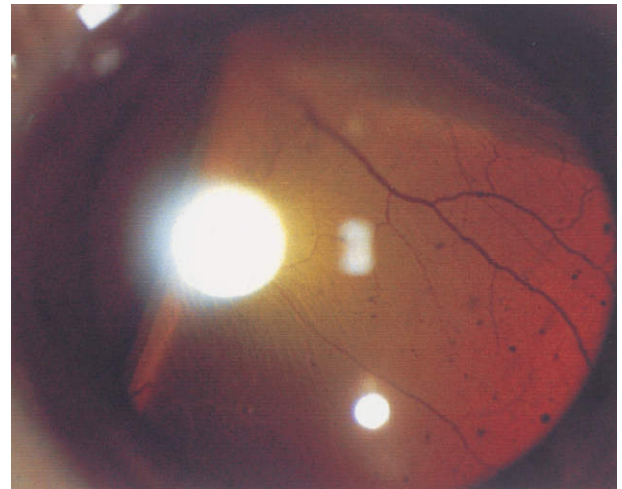


図 4 右眼手術前写真(1999 年 10 月 19 日).
胞状網膜剥離が著明で、水晶体後面に接触した。

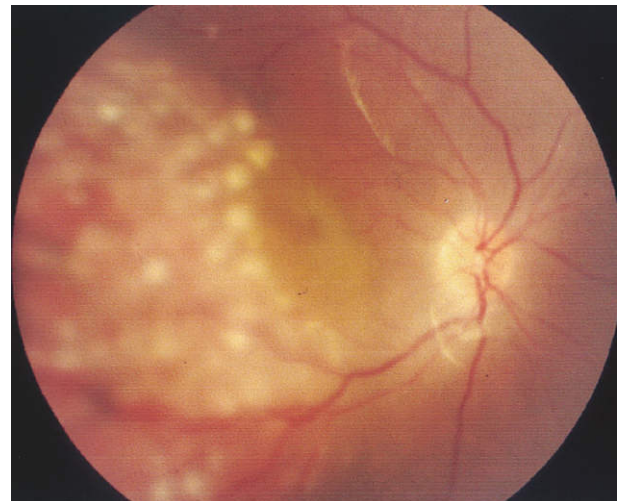


図 5 右眼硝子体手術翌日の写真(1999 年 10 月 22 日).
シリコンオイル充填下で網膜はほぼ復位し、脈絡膜血管腫表面の網膜光凝固斑が明瞭である。

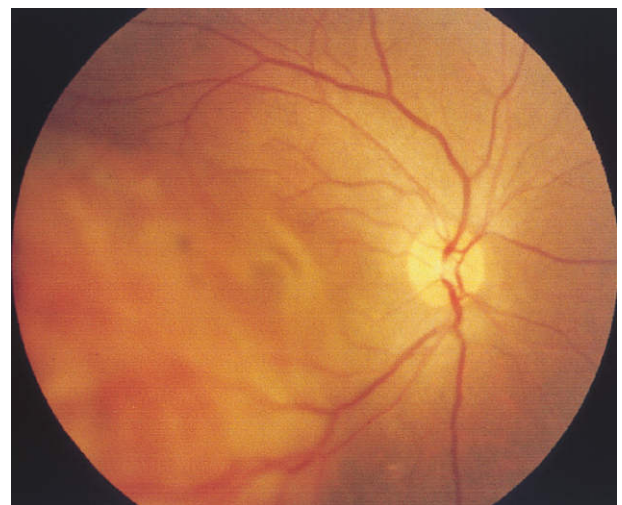


図 6 右眼経瞳孔温熱療法前の眼底(2000 年 3 月 8 日).
脈絡膜血管腫の周辺に滲出性網膜剥離が再発した。

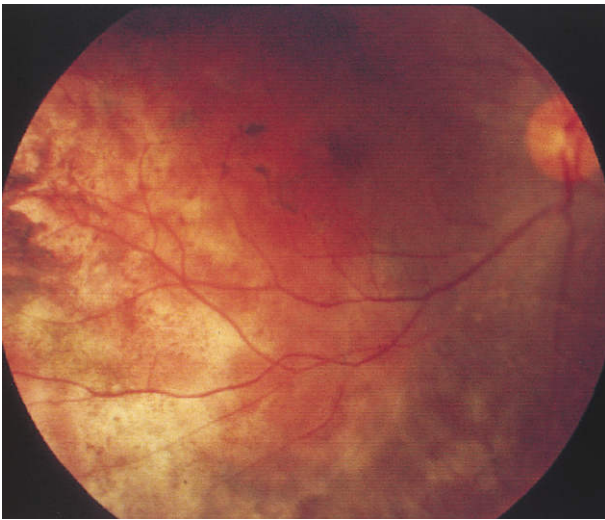


図 7 右眼経瞳孔温熱療法後の眼底(2000年8月1日)。
網膜は復位し脈絡膜血管腫表面は白色瘢痕組織と色素沈着に覆われている。

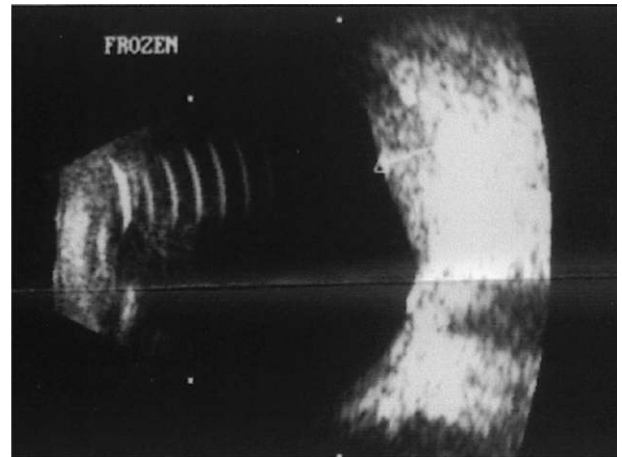


図 8 超音波 B モード検査(2000年8月1日)。
腫瘍は縮小化し最大厚も 4.0 mm に縮小した。

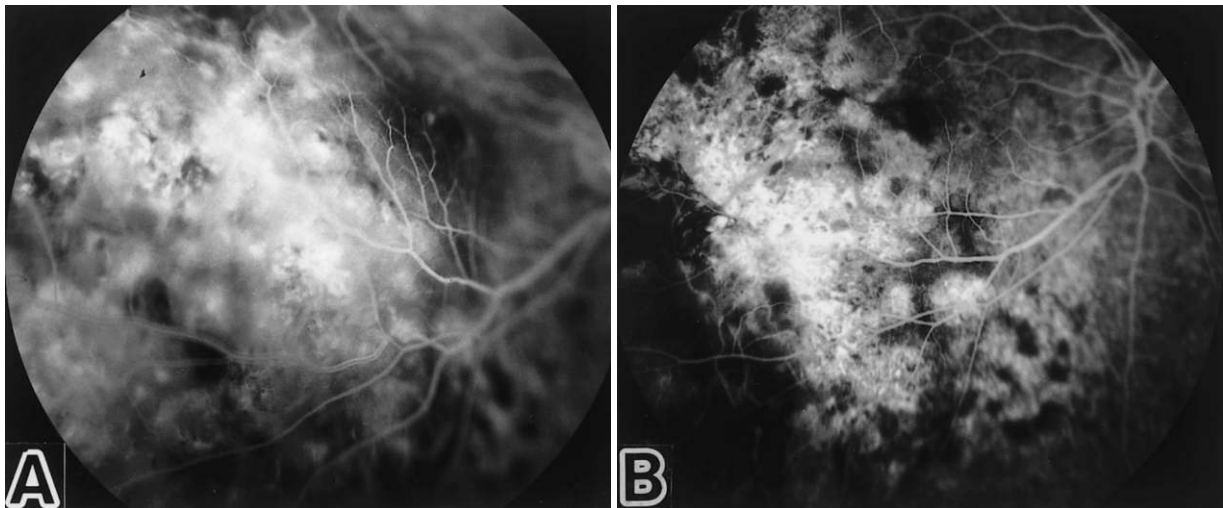


図 9 右眼フルオレセイン蛍光造影眼底写真。

- A：経瞳孔温熱療法追加前(2000年5月23日)。腫瘍表面が著明な過蛍光を呈し、時間とともに過蛍光は周辺に拡散した。
B：経瞳孔温熱療法追加後(2000年9月19日)。中心窩近傍で虫食い上の過蛍光が存在するが、周辺への漏出はみられない。血管腫の耳側から下方の大半は低蛍光を呈した。

療法追加治療前に観察された蛍光漏出は治療後で著明に軽減し、治療効果が確認された(図9)。経瞳孔温熱療法追加6か月後の現在、網膜再剥離などの腫瘍の活性化を推定する所見はない。

III 考 按

網膜剥離を合併した孤立性脈絡膜血管腫の治療として、網膜光凝固が施行されることが多い。その有用性については多くの報告^{1)3)~6)}があるが、網膜剥離の再発は約40%にみられるともいわれ³⁾、複数回の網膜光凝固が行われることも少なくない。視力予後も平均0.1以下とされ芳しいとはいえない³⁾。Madreperla ら⁶⁾によれば、

治療後1年で視力を維持したのは23%で、69%で低下した。本症例でも網膜光凝固は無効で、むしろ胞状網膜剥離の進行を刺激したように思われた。

さらに、胞状網膜剥離を合併した場合、網膜下液排液や硝子体手術が有用であると成書には記述されている¹⁾が、具体的な方法や効果についての報告は渉猟する限りほとんどない。松浦ら⁸⁾は Sturge-Weber 症候群のびまん性脈絡膜血管腫に合併した滲出性胞状網膜剥離に硝子体手術、網膜下液内部排液、シリコンオイル注入を行い、網膜光凝固を追加して未凝固の後極と最周辺部以外の網膜で復位が得られた症例を報告した。本症例では胞状網膜剥離の程度が水晶体に接触するほど重篤であり、

網膜下液排液は経強膜的に施行した。また、網膜剥離が再発した場合に裂孔原性網膜剥離に移行することを危惧して、硝子体手術施行時に意図的網膜裂孔を作製することは避けた。したがって、術中に網膜の完全復位は得られなかったが、血管腫のほぼ全面に眼内光凝固の施行が可能となる程度にほぼ復位した。シリコンオイル充填中は網膜下液の増加はなく、さらに、光凝固の追加も可能であった。シリコンオイル充填は光凝固の効果が得られるまでの時間かせぎとして有効であったと思われる。白内障の合併を危惧して、約 1 か月の充填で除去したところ再び網膜剥離が徐々に進行した。この経過は、胞状網膜剥離を一時的に網膜復位させるには硝子体手術とシリコンオイル充填は有用であるが、腫瘍の厚みや大きさによっては光凝固による網膜剥離の治療に限界があることを示した。

福地ら⁷⁾は胞状網膜剥離を合併した孤立性脈絡膜血管腫に複数回の網膜下液排液、網膜光凝固、さらに、インターフェロン療法を施行したが、治療に抵抗性であった症例に低線量の放射線外照射治療 (22 Gy) を行い、網膜復位を得たと報告した。難治例に対する放射線治療として放射線外照射⁷⁾¹²⁾¹³⁾、Cobalt-60 埋込み術¹⁴⁾などの有用性が報告されている。多数例の検討では、各々の方法で大多数で滲出性網膜剥離が軽減あるいは消失しているが、同時に白内障や続発性緑内障、原因不明の視力障害など放射線治療特有の合併症も少なからず経験されている¹²⁾¹³⁾¹⁵⁾。本症例の治療経過中、放射線療法を適応することも選択肢の一つではあったが、放射線療法は頻回の通院治療を要すること、合併症があり得ることを患者と相談のうえ、温熱療法をまず選択することとした。特に孤立性脈絡膜血管腫の場合、半導体レーザーの照射部位がわかりやすいことに加え、重篤な合併症も少なく、治療法が容易である温熱療法を放射線療法に先駆けて施行する意義は大きいと考えた。

今回、温熱療法を施行して網膜下液の消失に加えて、脈絡膜血管腫の縮小が得られた。これは網膜光凝固治療などでは得られない効果である。脈絡膜血管腫に対する経瞳孔温熱療法は比較的新しい治療法であり、1999 年に初めて症例報告⁹⁾¹⁰⁾がなされ、2000 年に Garcia-Arumi ら¹¹⁾により 8 例の臨床検討が報告された。彼らは 8 例全例で網膜復位と腫瘍の縮小が得られたことを示した。一方、脈絡膜黒色腫や網膜芽細胞腫の眼内悪性腫瘍に対して、本法の有用性はそれ以前から確認されている^{16)~19)}。脈絡膜悪性黒色腫の場合、放射線治療との併用治療として検討されているが、温熱療法によって腫瘍細胞は壊死となり、その深達性は腫瘍表面から 3.9 mm であることが組織学的に観察された¹⁶⁾。そこで Garcia-Arumi らは脈絡膜血管腫の治療応用の際に、腫瘍の厚みが 3.5 mm 以下のものを適応症例として検討した。本症例は腫瘍の厚みが約 6.0 mm あったが、網膜復位

と縮小化が得られた。施行後 2 か月で腫瘍の厚みは約 4 mm と軽減しているもののまだ残存しており、今後、網膜剥離再発の可能性も考えられるが、温熱療法は複数回の治療も可能であり、大きな腫瘍であっても十分効果が期待できると考えられた。脈絡膜血管腫の温熱療法の治療機序として、腫瘍内の海綿状血管腔の閉塞や硬化の誘発が推測されている¹¹⁾。今回、温熱療法施行後に網膜下の線維性瘢痕化と色素沈着が明瞭に観察され、温熱療法が腫瘍表面の線維化を促進させ、網膜と色素上皮の癒着形成を強固にしたのではないかと考えられた。なお、本症例では温熱療法の施行中に網膜血管の閉塞や出血などの明らかな合併症はなかった。Garcia-Arumi ら¹¹⁾の検討でも術中の軽度な網膜内出血を 1 例に経験したのみであり、安全性も通常の網膜光凝固と比較して低いとは考えにくい。

赤外光を利用する経瞳孔温熱療法は、深達性が高く、網膜障害も少ない可能性が高く、使用法も容易であるため、脈絡膜血管腫の治療法として最初から選択できる可能性を有している。今後、治療効果を判定するためには症例の積み重ねと長期の観察を要するが、治療適応を拡大するためには、治療機序についてもさらに追究することが大切であると考ええる。

文 献

- 1) Shields JA, Shields CL : Intraocular Tumors : A Text and Atlas. WB Saunders Company, Philadelphia, 240—250, 1992.
- 2) Witschel H, Font RL : Hemangioma of the choroid : A clinicopathologic study of 71 cases and a review of the literature. *Surv Ophthalmol* 20 : 415—431, 1976.
- 3) Anand R, Augsburger JJ, Shields JA : Circumscribed choroidal hemangiomas. *Arch Ophthalmol* 107 : 1338—1342, 1989.
- 4) Sanborn GE, Augsburger JJ, Shields JA : Treatment of circumscribed choroidal hemangiomas. *Ophthalmology* 89 : 1374—1380, 1982.
- 5) Augsburger JJ, Shields JA, Moffat KP : Circumscribed choroidal hemangiomas : Long-term visual prognosis. *Retina* 1 : 56—61, 1981.
- 6) Madreperla SA, Hungerford JL, Plowman PN, Laganowski HC, Gregory PT : Choroidal hemangiomas. Visual and anatomic results of treatment by photocoagulation or radiation therapy. *Ophthalmology* 104 : 1773—1779, 1997.
- 7) 福地俊雄, 高橋寛二, 足立和己, 山中理恵, 岩下憲四郎, 西村哲也, 他 : 放射線療法が奏効した大型の脈絡膜血管腫の症例. *臨眼* 52 : 1273—1277, 1998.
- 8) 松浦祥子, 白神千恵子, 高須逸平, 白神史雄, 大月洋 : 硝子体手術の奏功した滲出性胞状網膜剥離の 2 例. *眼紀* 50 : 786—790, 1999.
- 9) Othmane IS, Shields CL, Shields JA, Gunduz K,

- Mercado G** : Circumscribed choroidal hemangioma managed by transpupillary thermotherapy. *Arch Ophthalmol* 117 : 136—137, 1999.
- 10) **Rapizzi E, Grizzard WS, Capone A Jr** : Transpupillary thermotherapy in the management of circumscribed choroidal hemangioma. *Am J Ophthalmol* 127 : 481—482, 1999.
- 11) **Garcia-Arumi J, Ramsay LS, Guraya BC** : Transpupillary thermotherapy for circumscribed choroidal hemangiomas. *Ophthalmology* 107 : 351—357, 2000.
- 12) **Scott TA, Augsburger JJ, Brady LW** : Low dose ocular irradiation for diffuse choroidal haemangiomas associated with bullous nonrhegmatogenous retinal detachment. *Retina* 11 : 389—393, 1991.
- 13) **Alberti W** : Radiotherapy of choroid. *Rad Onc Biol Phys* 12 : 122—123, 1986.
- 14) **Zografos L, Bercher L, Egger E** : Cobalt-60 treatment of choroidal hemangiomas. *Am J Ophthalmol* 121 : 190—199, 1996.
- 15) **MacFaul PA, Bedford MA** : Ocular complications after therapeutic irradiation. *Br J Ophthalmol* 54 : 237—247, 1970.
- 16) **Journee-de Korver JG, Oosterhuis JA, deWolff-Rouendaal D, Kemme H** : Histopathological findings in human choroidal melanomas after transpupillary thermotherapy. *Br J Ophthalmol* 81 : 234—239, 1997.
- 17) **Oosterhuis JA, Journee-de Korver HG, Kakebeeke-Kemme HM, Bleeker JC** : Transpupillary thermotherapy in choroidal melanomas. *Arch Ophthalmol* 113 : 315—321, 1995.
- 18) **Shields CL, Shields JA, Cater J, Lois N, Edelstein C, Gunduz K, et al** : Transpupillary thermotherapy for choroidal melanoma : Tumor control and visual results in 100 consecutive cases. *Ophthalmology* 105 : 581—590, 1998.
- 19) **Shields CL, Santos MC, Diniz W, Gunduz K, Mercado G, Cater JR, et al** : Thermotherapy for retinoblastoma. *Arch Ophthalmol* 117 : 885—893, 1999.
-