

孤立性脈絡膜血管腫 28 眼の臨床的検討

馬詰和比古, 後藤 浩, 木村 圭介, 川上 摂子
笠井健一郎, 臼井 嘉彦, 若林 美宏

東京医科大学眼科学教室

要 約

目的: 孤立性脈絡膜血管腫の臨床像と治療予後を明らかにする。

方法: 1991 年 4 月から 2008 年 3 月までに東京医科大学病院眼科で診断された孤立性脈絡膜血管腫 28 例を対象として, 性別, 年齢, 血管腫の大きさ, 黄斑部漿液性網膜剝離の有無, 遠視化の有無, 治療方法, 視力予後について後ろ向きに検討した。

結果: 性別は男性 16 眼, 女性 12 眼で, 平均年齢は 55 歳であった。血管腫の大きさは平均 3.3 乳頭径大であった。中心窩の漿液性網膜剝離は不明であった 1 眼を除き, 27 眼中 19 眼 (70%) に, 遠視化はデータ解析可能であった 17 眼中 10 眼 (59%) に認められた。治療につい

ては経過観察のみが 13 眼 (46%), 経瞳孔温熱療法 (TTT) が 10 眼 (36%), 色素レーザーが 5 例 (18%) であった。治療前後の視力は改善が 13 眼 (46%), 不変が 13 眼 (46%), 悪化が 2 眼 (7%) であった。

結論: 脈絡膜血管腫はすべての症例に治療の適応があるわけではない。治療の方法や実施時期については一定のコンセンサスが得られていない面もあるが, 比較的まれな疾患でもあるため, 症例に応じて適切に対応していくことが重要である。(日眼会誌 115: 454—459, 2011)

キーワード: 孤立性脈絡膜血管腫, 漿液性網膜剝離, 経瞳孔温熱療法, 色素レーザー

Review of Clinical Features of Circumscribed Choroidal Hemangioma in 28 Cases

Kazuhiko Umazume, Hiroshi Goto, Keisuke Kimura, Setsuko Kawakami
Kenichiro Kasai, Yoshihiko Usui and Yoshihiro Wakabayashi

Department of Ophthalmology, Tokyo Medical University

Abstract

Purpose: To review the clinical features and management of circumscribed choroidal hemangioma.

Methods: Twenty eight cases of circumscribed choroidal hemangioma diagnosed at Tokyo Medical University Hospital from 1991 through 2008 were reviewed. We retrospectively studied the frequency of the individual tumors, gender, age, size of tumors, presence of serous detachment and hyperopia, management and outcome.

Results: Sixteen patients were men and 12 cases were women. The average age was 55 years. The average basal diameter of the tumors was 3.3 optic disc. Serous retinal detachment was observed in 19 cases (70%). Seventeen eyes agreed with the definition of hyperopia, 10 cases (59%) developed hyperopia. Thirteen cases (46%) were observed without any

treatment, 10 cases (36%) were treated with transpupillary thermotherapy (TTT) and 5 cases (18%) were treated with dye laser. Thirteen cases (46%) showed improvement, 13 cases (46%) remained constant and 2 cases (7%) showed deterioration.

Conclusion: Circumscribed choroidal hemangioma is a relatively rare clinical entity. The management should be tailored to the individual patients including the tumor size presence of serous detachment and visual acuity.

Nippon Ganka Gakkai Zasshi (J Jpn Ophthalmol Soc 115: 454—459, 2011)

Key words: Circumscribed choroidal hemangioma, Serous retinal detachment, Transpupillary thermotherapy, Dye laser

別刷請求先: 160-0023 東京都新宿区西新宿 6-7-1 東京医科大学眼科学教室 馬詰和比古
(平成 22 年 6 月 21 日受付, 平成 22 年 11 月 26 日改訂受理) E-mail: kazuhiko-uma@kvf.biglobe.ne.jp

Reprint requests to: Kazuhiko Umazume, M.D. Department of Ophthalmology, Tokyo Medical University, 6-7-1 Nishi-Shinjyuku, Shinjyuku-ku, Tokyo 160-0023, Japan

(Received June 21, 2010 and accepted in revised form November 26, 2010)

I 緒 言

脈絡膜血管腫は脈絡膜に発生し、その形態により孤立性、またはびまん性に分類されるが、いずれも眼科疾患としては、比較的まれである。びまん性の病変は Sturge-Weber 症候群に随伴して発症する場合がある。一方、孤立性脈絡膜血管腫の中には無症状のまま経過し、検診などで偶然発見されることもある。検眼鏡的な所見としては、眼底の橙赤色または橙色の隆起性病変として観察され、しばしば漿液性網膜剝離を併発し、検眼鏡的に漏出変化がわずかであっても、光干渉断層計 (optical coherence tomography : OCT) によってその存在が明らかとなる場合もある。

脈絡膜血管腫の治療法には、色素レーザー¹⁾、経瞳孔温熱療法 (transpupillary thermotherapy : TTT)^{2)~4)}、放射線療法⁵⁾、手術療法⁶⁾などがあり、多岐にわたっているが、その目的の多くは随伴する漿液性網膜剝離の消退にある。また、近年では光線力学的療法 (photodynamic therapy : PDT) の有用性を示す報告もある^{7)~9)}。

本邦では、脈絡膜血管腫の臨床像や治療予後に関する多数例の報告は少ない。そこで、我々の施設で診断、治療もしくは経過観察を行うことのできた孤立性脈絡膜血管腫 28 例を対象に、視力予後を含めて臨床経過と治療方法を中心に報告する。

II 対象と方法

対象は、1991 年 4 月から 2008 年 3 月までに東京医科大学病院眼科 (以下、当科) を受診した孤立性脈絡膜血管腫 28 眼で、診療録をもとに後ろ向きに検討を行った。すなわち、これらの症例の年齢、性別、平均観察期間、発症に伴う遠視化の有無、脈絡膜血管腫の腫瘍径、腫瘍の局在、漿液性網膜剝離の有無、治療方法、視力予後について検討した。遠視化の有無は、本疾患が発見される前と比較して、当院初診時の屈折が 2 D 以上遠視化していた場合を遠視化ありと定義した。脈絡膜血管腫の腫瘍径は眼底写真より視神経乳頭を 1.5 mm と仮定し、最大直径を除いて求めた。なお、明らかな小乳頭などの、先天異常を疑わせる症例はなかった。漿液性網膜剝離の有無は、前置レンズを用いた眼底検査などに加え OCT を用い、中心窩下に及ぶ漿液性網膜剝離の有無を評価した。視力の変化は、無治療群、すなわち経過観察のみの症例については初診時と最終観察時の視力で評価し、治療群、すなわち何らかの治療を行った症例については、治療直前の視力と最終観察時の視力で評価した。視力変化の統計学的検討は、Wilcoxon singled rank test を用い有意水準 5% 以下を有意とし、視力改善度に関しては、logarithmic minimum angle of resolution (logMAR) 値に変換し 2 段階以上の変化を有意とした。

表 1 遠視化の有無が視力に及ぼす影響

	遠視化あり (n=10)	遠視化なし (n=7)
視力良好 ¹⁾	7 眼	4 眼
視力不良 ²⁾	3 眼	3 眼

¹⁾矯正視力 0.7 以上、²⁾矯正視力 0.6 以下。
遠視化の有無は視力不良の因子にならなかった (χ^2 検定, odd ratio=1.7)。

表 2 中心窩における漿液性網膜剝離の有無が視力に及ぼす影響

	剝離あり (n=18)	剝離なし (n=9)
視力良好 ¹⁾	5 眼	7 眼
視力不良 ²⁾	13 眼	2 眼

¹⁾矯正視力 0.7 以上、²⁾矯正視力 0.6 以下。
中心窩の漿液性網膜剝離は、視力不良の要因の一つと考えられた (χ^2 検定, odd ratio=9.1, p=0.02)。
漿液性網膜剝離不明 1 眼を除く 27 眼で検討した。

III 結 果

1. 年齢・性差・平均観察期間

年齢の分布は 14 歳～86 歳で平均年齢 55.0 歳であった。性別は男性 16 眼、女性 12 眼であり、経過観察期間は、1 か月～14 年 (平均 2 年 8 か月) であった。

2. 遠視化の有無

全 28 眼中、以前の屈折検査と比較検討できた症例は 17 眼であった。その中で遠視化を来した症例は 10 眼 (59%) であった。また、初診時の矯正視力が 0.6 以下を視力不良、0.7 以上を視力良好とした場合、遠視化の有無が視力不良の因子となるか否か検討したが、統計学的には有意な危険因子とはならなかった (表 1)。

3. 脈絡膜血管腫の腫瘍径・局在

腫瘍径の分布は、1.4 乳頭径～6.7 乳頭径 (平均 3.3 乳頭径) であった。脈絡膜血管腫の局在を中心窩に及んで存在するもの、黄斑部にあるが中心窩に及ばないもの、その他に分類したところ、中心窩に及ぶ症例は 19 眼 (68%)、中心窩に及ばない症例は 6 眼 (21%)、視神経乳頭鼻側が 2 眼 (7%)、視神経乳頭下方が 1 眼 (4%) であり黄斑部に多く局在していた。

4. 中心窩の漿液性網膜剝離の有無

初診時における中心窩の漿液性網膜剝離は不明であった 1 眼を除き、27 眼中 19 眼 (70%) に認めた。治療前の漿液性網膜剝離の有無と腫瘍の局在との関連をみると、腫瘍が中心窩に及んで存在し、かつ漿液性網膜剝離を認めた症例は 19 眼中 12 眼 (63%) であった。また、腫瘍が中心窩に及ばずに、かつ漿液性網膜剝離を認めた症例が 9 眼中 7 眼 (78%) であり、その多くは下方に広範な網膜剝離を来していた。すなわち、中心窩の漿液性網膜剝離の存在と腫瘍の局在には明らかな関連はなかった。また、中心窩の漿液性網膜剝離が視力不良の因子となるか

検討したところ、統計学的に有意な危険因子であることが明らかとなった(odd ratio=9.1, p=0.02)(表 2)。

5. 治療方法

特に治療をせず、経過観察を継続した症例は 13 眼(46%)であった。TTT を施行した症例は 10 眼(36%)、色素レーザーを施行した症例は 5 眼(18%)で、この 5 眼のうち 1 眼には TTT, 2 眼には硝子体手術を併施した。硝子体手術を併施した症例は、血管新生緑内障と網膜全剝離を来した症例であった。

6. 視力予後

初診時視力と最終視力との比較(無治療群), ならびに何らかの治療を行った直前の視力と最終視力との比較(治療群)により, 全 28 症例の視力予後を検討したところ, 統計学的に有意な視力改善が得られた(表 3)。全症例の視力改善度は, 改善が 13 眼(46%), 不変が 13 眼(46%), 増悪が 2 眼(7%)であった。

経過観察のみを行った群(無治療群)の一覧を表 4 に示した。無治療群における視力改善度は, 改善 4 眼, 不変 8 眼, 悪化 1 眼であった。初診時の段階で既に指数弁であった症例は, 治療を望まなかったことより経過観察となったが, 無治療群では全体的な傾向として初診時視力が治療群と比較して有意に視力良好で(表 5), 中心窩における漿液性網膜剝離を伴っていた症例は 13 眼中 4 眼(31%)と, その割合が少なかった。

TTT による治療を行った群(TTT 群)の視力改善度は, 改善 7 眼(70%), 不変 3 眼(30%)と多くの症例で治

療効果が得られた(表 6)。なお, TTT を施行した 10 眼はいずれも中心窩の漿液性網膜剝離を伴っていた。TTT 群の中には一度の治療では効果がなく, 視力改善までに複数回の治療に及んだ症例もみられた。

色素レーザーによる治療を行った群(色素レーザー群)は, 調査期間の中でも比較的初期の症例に限られ, 症例数も少ないが, 視力は改善 2 眼(40%), 不変 2 眼(40%), 増悪 1 眼(20%)とばらつきがみられた。

7. 代表症例の提示

症例: 70 歳, 女性。

主訴: 右視力低下。

現病歴: 2008 年 5 月頃から右眼の視力低下と歪みを自覚し, 右眼底の黄斑部に隆起性病変を認めたことから, 2008 年 6 月 5 日当科紹介受診となった。

初診時所見: 右視力=0.1(0.6×+3.50 D), 左視力=0.05(1.5×+5.25 D), 眼圧は右 16 mmHg, 左 12 mmHg であった。前眼部は両眼ともに軽度の白内障を認めるほか, 異常所見はなかった。右眼の眼底に黄斑部上方に橙色の隆起病変がみられ(図 1), 中心窩に及ぶ漿液性網膜剝離を伴っていた。B モード超音波断層検査で脈絡膜の隆起病変が確認された。

治療と経過: 眼底所見とフルオレセイン蛍光眼底造影検査などから孤立性脈絡膜血管腫と診断し, 漿液性網膜剝離による視力低下を来していたため(図 2 A), TTT を施行した。2008 年 6 月 26 日にスポットサイズ 3 mm, 出力 500 mW, 60 秒の条件, 同年 7 月 10 日にスポットサイズ 3 mm, 出力 530 mW, 60 秒の条件, さらに同月 24 日にスポットサイズ 3 mm, 出力 560 mW, 60 秒の条件で計 3 回, 隆起病変に対して照射した。TTT 施行から約 9 か月後の 2009 年 4 月 9 日の診察時には脈絡膜の隆起性病変は残存するも中心窩に及んでいた漿液性網膜剝離は消失していた(図 2 B)。右視力は矯正(1.0×+4.50 D)と改善し, 遠視化もわずかに軽減した。その後,

表 3 視力予後

	中央値(四分位範囲)
初診時 ¹⁾ もしくは治療直前の視力 ²⁾	0.6(0.085~0.775)
最終視力	0.7(0.200~1.200)

¹⁾無治療群における初診時視力, ²⁾何らかの治療を行った症例における治療直前の視力。*: p<0.002。

表 4 無治療群の症例一覧

年齢・性別	中心窩漿液性網膜剝離の有無	腫瘍の局在	初診時視力*	最終視力*	観察期間
48 男	+	中心窩(+)	0.4	0.4	11 年
86 男	-	中心窩(-)下方	0.4	1.0	9 年 3 か月
62 男	-	中心窩(+)	1.2	1.2	6 年
72 男	-	中心窩(+)	0.7	1.5	6 年
61 男	+	中心窩(-)上方	CF**	0.01	5 年
60 女	-	中心窩(+)	0.8	0.6	2 年
64 女	-	中心窩(+)	0.6	1.0	2 年
75 女	-	中心窩(-)耳側	0.7	0.7	1 年 6 か月
60 男	-	中心窩(+)	1.2	1.2	1 年
55 男	+	中心窩(+)	1.5	1.5	1 年 6 か月
64 男	-	中心窩(+)	0.7	0.7	1 年 2 か月
14 男	+	中心窩(+)	0.8	0.8	1 年 1 か月
48 男	-	中心窩(+)	2.0	2.0	9 か月

中心窩(+): 中心窩に及ぶ腫瘍, 中心窩(-): 中心窩に及ばない腫瘍。*: 小数視力, **: 指数弁。

1 年 5 か月の間、漿液性網膜剝離の再発はみられていない。

IV 考 按

今回の我々の検討した結果を、2001 年の Shields らによる多数例の報告¹⁾と、臨床症状、治療方法などから比較検討した。Shields らよれば孤立性脈絡膜血管腫と診断された症例の主訴は視力低下が 81% と最多で、次に視野欠損 13%、変視症 5% を占め、多くが視力低下を機に受診をしていた。我々の施設においても 28 眼中 25 眼 (89%) に視力低下がみられ、やはり最多であった。腫瘍径に関しては、既報¹⁾では平均 6.7 mm であったのに対し、今回の我々の検討では平均 5.0 mm (3.3 乳頭径) とやや小さい傾向にあった。腫瘍の局在に関しては、既報¹⁾ではすべての症例が黄斑部に存在していたのに対して、自験例では 9 例 (32%) が黄斑を回避していた。黄斑を回避していた症例の多くは下方に広範な網膜剝離を来しており、視野異常を自覚して眼科を受診していた。検眼鏡的所見に関しては、既報¹⁾では 81% に漿液性網膜剝離を併発しており、その他にも網膜色素上皮過形成を 33% に、網膜色素上皮化生を 20% に認めたという。一方、我々の症例では 19 眼 (70%) で中心窩に漿液性網膜剝離がみられた。本疾患に対する治療方針としてこれまでもさまざまな治療法が試みられている。Shields らの既報¹⁾では、無治療 (経過観察のみ) 51%、レーザー光凝固 39%、キセノンアーク光凝固 5%、上強膜プラーク放射線療法 4%、外科的治療 1% であった。我々の施設においても経過観察はほぼ同等の 50% であったが、これら



図 1 初診時眼底写真。
矢頭で記した範囲に脈絡膜血管腫が存在。

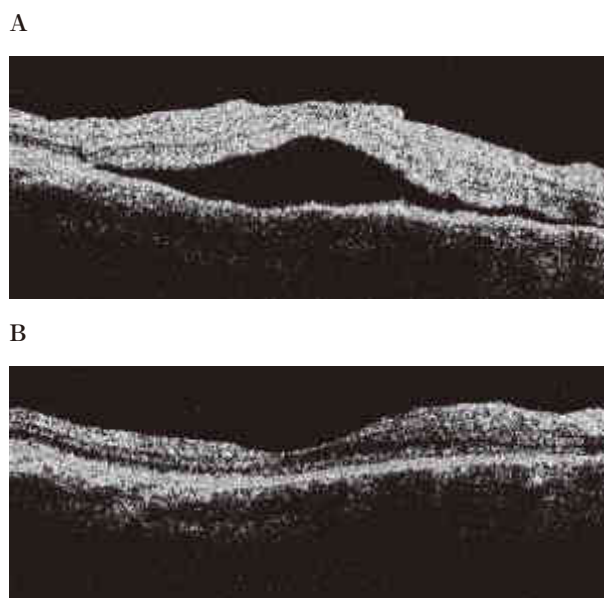


図 2 光干渉断層計 (OCT) 像。
A : 初診時. B : 経瞳孔温熱療法 (TTT) 後約 9 か月。

表 5 治療別にみた初診時視力の差異

治療方法	中央値
経過観察	0.700
経瞳孔温熱療法 (TTT)	0.150
色素レーザー	0.080

経過観察群は、他の治療群と比較し初診時視力が有意に良好であった。* : $p < 0.05$ 。

表 6 経瞳孔温熱療法 (TTT) を施行した症例一覧

年齢・性別	漿液性網膜剝離の有無	腫瘍の局在	初診時視力*	最終視力*
44 女	+	中心窩 (+)	0.2	0.7
62 女	+	中心窩 (+)	0.1	0.4
43 女	+	中心窩 (+)	0.1	0.5
49 女	+	中心窩 (+)	0.07	0.2
29 男	+	中心窩 (+)	0.01	0.01
50 女	+	中心窩 (+)	0.06	0.06
70 女	+	中心窩 (-) 上方	0.6	0.9
58 男	+	中心窩 (-) 上方	0.2	0.2
51 男	+	乳頭鼻側	0.7	1.2
58 男	+	乳頭下方	0.7	1.5

中心窩 (+) : 中心窩に及ぶ腫瘍, 中心窩 (-) : 中心窩に及ばない腫瘍. * : 小数視力.

13 眼のうち 12 眼 (92%) は経過観察期間中、視力が低下することなく推移した。無治療群の予後が比較的良好であった理由として、もともと初診時視力が有意に良好であったこと、血管腫の所在が黄斑部にあっても必ずしも視力低下を来していないことがあること、また漿液性網膜剥離が黄斑部に併発していない症例が多くを占めていたことなどが挙げられる。また今回、我々は孤立性脈絡膜血管腫における視力低下の要因として遠視化と中心窩の漿液性網膜剥離に注目し、検討を行ったが、後者は統計学的にも視力低下の要因の一つであることが示された。すなわち、治療せずに経過観察とするか、あるいは何らかの治療に踏み切るかを決定するにあたっては、中心窩における漿液性網膜剥離の有無を判断の指標とすることが重要と考えられた。今回の我々の施設における検討では、孤立性脈絡膜血管腫の治療として TTT を実施した症例が多くを占めていた。TTT を施行した症例はすべてに中心窩の漿液性網膜剥離を伴っており、TTT を複数回施行した症例も存在したが、最終的には全例で漿液性網膜剥離の消失が得られ、TTT の有用性が改めて確認された。我々の施設では、中心窩に及ぶ漿液性網膜剥離があり、視力低下を来している症例に対しては、中心窩を避け、その周囲の隆起性病変に対する TTT を第一選択としている。孤立性脈絡膜血管腫に対する TTT の有用性についてはこれまでも多くの報告がみられる^{2)~4)}。Garcia-Arumi ら²⁾ は、8 眼中 5 眼で視力の改善が得られ 3 眼で治療前の視力が維持されたと報告しており、8 眼全例で漿液性網膜剥離の改善を確認している。Fuchs ら³⁾ は、8 眼中 4 眼で視力が改善し、残りの 4 眼も視力の維持が、また、腫瘍厚も 8 眼中 6 眼で減少したと報告している。孤立性脈絡膜腫瘍の治療法としては、手術療法⁶⁾、マイクロ波療法¹⁰⁾、冷凍凝固療法¹¹⁾、放射線外照射療法¹²⁾、近接照射療法¹³⁾、コバルト 60 放射線療法⁵⁾、光凝固¹⁾などがある。手術療法は広範な網膜剥離を来した症例が対象となることがほとんどであるが、視力予後は不良なことが多いようである。冷凍凝固療法はプローブの先端を病変部、すなわち眼球の後極部へ施すことが困難なことが多く、適応は限られる。放射線外照射療法は、副作用として黄斑症や視神経への障害を来す危険性があること、近接照射療法は血管腫が存在しない網膜や脈絡膜への影響が懸念されることなどから、現在は積極的に行われている治療法ではない。しかし、TTT などの治療に抵抗を示す症例や、びまん性脈絡膜血管腫には現在も行われている。一方、最近では PDT により治療効果が得られたとの報告^{7)~9)}が散見される。Boixadera ら⁷⁾の報告では、孤立性脈絡膜血管腫に対して PDT を施行したところ、69% が視力改善を示し、93% で滲出性変化の消失が得られたとその有用性を報告している。現在、孤立性脈絡膜血管腫に対する PDT は本邦では保険適用疾患として認可されていないため実

施には慎重に臨む必要がある。今後、今回示された TTT の治療成績などと比較検討することも必要と考えられ、また TTT に抵抗を示す症例に対する効果などが期待される。

文 献

- 1) Shields CL, Honavar SG, Shields JA, Cater J, Demirci H : Circumscribed choroidal hemangioma : clinical manifestations and factors predictive of visual outcome in 200 consecutive cases. *Ophthalmology* 108 : 2237—2248, 2001.
- 2) García-Arumí J, Ramsay LS, Guraya BC : Transpupillary thermotherapy for circumscribed choroidal hemangiomas. *Ophthalmology* 107 : 351—356, 2000.
- 3) Fuchs AV, Mueller AJ, Grueterich M, Ulbig MW : Transpupillary thermotherapy (TTT) in circumscribed choroidal hemangioma. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol* 240 : 7—11, 2002.
- 4) 若林美宏, 後藤 浩, 村松大弐 : 経瞳孔温熱療法が有効であった孤立性脈絡膜血管腫の 3 例. *臨眼* 101 : 419—423, 2007.
- 5) Zografos L, Bercher L, Chamot L, Gailloud C, Raimondi S, Egger E : Cobalt-60 treatment of choroidal hemangiomas. *Am J Ophthalmol* 121 : 190—199, 1996.
- 6) Shields JA, Shields CL, Materin MA, Marr BP, Demirci H, Mashayekhi A : Changing concepts in management of circumscribed choroidal hemangioma : the 2003 J. Howard Stokes Lecture, Part 1. *Ophthalmic Surg Lasers Imaging* 35 : 383—394, 2004.
- 7) Boixadera A, García-Arumí J, Martínez-Castillo V, Encinas JL, Elizalde J, Blanco-Mateos G, et al : Prospective clinical trial evaluating the efficacy of photodynamic therapy for symptomatic circumscribed choroidal hemangioma. *Ophthalmology* 116 : 100—105, 2009.
- 8) 庄司拓平, 高橋宏和, 朴真紗美 : 再発性脈絡膜血管腫に対して光線力学的療法が有効であった 1 例. *臨眼* 60 : 389—394, 2006.
- 9) Shields CL, Materin MA, Marr BP, Mashayekhi A, Shields JA : Resolution of advanced cystoid macular edema following photodynamic therapy for choroidal hemangioma. *Ophthalmic Surg Lasers Imaging* 36 : 237—239, 2005.
- 10) Finger PT, Paglione RW, Packer S : Microwave thermotherapy for choroidal hemangioma. *Am J Ophthalmol* 111 : 240—241, 1991.
- 11) Humphrey WT : Choroidal hemangioma : Response to cryotherapy. *Ann Ophthalmol* 11 : 100—104, 1979.
- 12) Schilling H, Sauerwein W, Lommatzsch A, Friedrichs W, Brylak S, Bornfeld N, et al : Long-term results after low dose ocular irradiation for choroidal haemangiomas. *Br J Ophthalmol* 81 : 267—273, 1997.

- 13) **Aizman A, Finger PT, Shabto U, Szechter A, Berson A** : Palladium 103(103Pd) plaque radiation therapy for circumscribed choroidal hemangioma with retinal detachment. Arch Ophthalmol 122 : 1652—1656, 2004.
-