症例報告

テント部髄膜腫摘出後に消失した硬膜動静脈瘻の2例

郭 樟 吾 市 川 輝 夫 瓜 生 康 浩 蔦 木 明 美
岡 田 富 宮 原 宏 輔 向 原 茂 雄 藤 津 和 彦

Dural Arteriovenous Fistula associated with Tentorial Meningioma : Disappearance after Tumor Removal : Report of Two Cases

by

Shougo Kaku, M.D., Teruo Ichikawa, M.D., Yasuhiro Uriu, M.D., Akemi Tsutaki, M.D.,
Tomu Okada, M.D., Kousuke Miyahara, M.D., Shigeo Mukaiharu, M.D., and Kazuhiko Fujitsu, M.D.

from

Department of Neurosurgery, National Hospital Organization Yokohama Medical Center

Although the pathogenesis of dural arteriovenous fistula (DAVF) remains controversial, a few recent articles have reported in support of the viewpoint that it is an acquired lesion. These include a range of different theories regarding the mechanism of occurrence of acquired DAVF, but few articles have discussed the mechanism of its disappearance in detail. We describe two cases of the disappearance of DAVF of the transverse-sigmoid sinus after removal of the associated tentorial meningioma on the same side, and speculate that the vascular structures surrounding the acquired DAVF that associated the tumor may have contributed to the disappearance of the acquired DAVF. However, as it is difficult to assess such structures preoperatively, this speculation must be supported in future with studies of further cases, including diagnostic imaging.

(Received May 31, 2010 ; accepted October 15, 2010)

Key words : dural arteriovenous fistula, tentorial meningioma, sinus thrombosis

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 20 : 300-305, 2011

緒 言

硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula : DAVF) は頭蓋内血管奇形の約 10~15%⁵⁾を占め、その発生機序に関しては多くの議論がなされているが、最近では後天性説を支持する論文が多い¹⁾²⁾⁴⁾¹⁰⁾。しかしながら、DAVF の消失機序を詳細に論じている文献は少ない。

今回われわれは、テント部髄膜腫摘出後に消失した横・S 状静脈洞 DAVF (TS-DAVF) の2例を経験し、後天性 DAVF の消失機序に関して考案・推察する機会を得たため若干の文献的考察を加えて報告する。

症例提示

【症例 1】

患 者 : 67 歳, 女性

既往歴・外傷歴 : 特記事項なし

現病歴 : 1 年前より頭痛が出現し近医で精査したところ, MRI で脳腫瘍が疑われたため加療目的にて当院紹介となった。

入院時現症 : 意識清明, 耳鳴や小脳失調症状含め神経学的に明らかな異常は認められなかった。

入院時神経放射線および手術所見 : 頭部 MRI では Gd-DTPA にて均一に造影される S 状静脈洞に接した左テ

独立行政法人国立病院機構横浜医療センター脳神経外科 / 〒245-8575 横浜市戸塚区原宿 3-60-2 [連絡先 : 郭 樟吾]

Address reprint requests to : Shougo Kaku, M.D., Department of Neurosurgery, National Hospital Organization Yokohama Medical Center, 3-60-2 Harajuku, Totsuka-ku, Yokohama-shi, Kanagawa 245-8575, Japan

Fig. 1 Axial (A) and coronal (B) T1-weighted magnetic resonance imaging with Gd-DTPA showing a left tentorial meningioma.

Left common carotid angiogram (C: lateral view, D: anteroposterior view; arterial phase, E: anteroposterior view; venous phase) showing dural arteriovenous fistula in the left transverse-sigmoid sinus.

Fig. 2 Post-operative T1-weighted axial (A) and coronal (B) imaging with Gd-DTPA showing a slightly enhancement around the left transverse-sigmoid sinus.

Post-operative left common carotid angiogram (C: lateral view, D: anteroposterior view; arterial phase, E: anteroposterior view; venous phase) showing disappearance of the dural arteriovenous fistula.

Fig. 3 Axial (A) and coronal (B) T1-weighted magnetic resonance imaging with Gd-DTPA showing recurrence of the left tentorial meningioma.

Left common carotid angiogram (C: lateral view, D: anteroposterior view; arterial phase, E: anteroposterior view; venous phase) showing dural arteriovenous fistula in the left transverse-sigmoid sinus.

ント部髄膜腫を認めた (Fig. 1A, B). また, 脳血管撮影では後頭・後耳介動脈を流入動脈とする左 TS-DAVF を認め, 導出静脈は横・S 状静脈洞であった (Fig. 1C~E). 手術はテント上下に渡る後頭開頭で行った. 腫瘍はテントに付着し, 弾性軟で後頭葉との癒着は認めなかったが, 同部位の静脈洞壁は一部欠損していた. さらに摘出を進めていくと, 著しい静脈性の出血が認められたため筋肉片とフィブリン糊で静脈洞壁を形成しつつ被覆した. 肉眼的に全摘出し, 付着部テントは切除したが術野で fistula point は確認できなかった. なお, 病理は meningothe-lial meningioma であった.

術後経過: 術後の MRI では横・S 状静脈洞部に若干の造影所見が認められたが (Fig. 2A, B), 脳血管撮影では TS-DAVF は消失 (Fig. 2C, D) しており, 横・S 状静脈洞は造影されなかった (Fig. 2E). 経過順調にて術後 2 週間で独歩退院し, 術後 1 年現在でも腫瘍の再増大や TS-DAVF の再発は認められていない.

【症例 2】

患 者: 76 歳, 男性

既往歴・外傷歴: 2004 年に当院にて後頭葉円蓋部髄膜腫摘出術施行 (Simpson's Grade II, 病理: atypical men-

ingioma, MIB-1 index: 20%). その際の脳血管撮影では明らかな TS-DAVF は認められなかった.

現病歴: 術後経過順調であったが, 外来経過観察中に腫瘍の再増大が認められたため加療目的にて入院した.

入院時現症: 意識清明. 耳鳴や小脳失調症状含め神経学的に明らかな異常は認められなかった.

入院時神経放射線および手術所見: 頭部 MRI では, Gd-DTPA にて造影される S 状静脈洞に接した左テント部髄膜腫を認めた (Fig. 3A, B). また, 脳血管撮影では後頭動脈を流入動脈とする左 TS-DAVF を認め, 導出静脈は横・S 状静脈洞であった (Fig. 3C~E). 手術はテント上下に渡る後頭開頭で行った. 腫瘍はテントに付着し, 弾性軟であったが後頭葉と強く癒着しており arachnoid plane は不明瞭であった. 本症例においても腫瘍は静脈洞壁に浸潤, かつ静脈洞内に一部進入しており, 同部位の静脈洞壁は一部欠損・開口していた. さらに摘出を進めていくと, 著しい静脈性の出血が認められたため筋肉片とフィブリン糊で被覆したが, 完全に止血されなかったため縫合し, 静脈洞壁の再建を行った. 肉眼的に全摘出し, 付着部テントは切除したが術野で fistula point は確認できなかった. なお, 病理は前回と同様であった.

術後経過: 術後の MRI では明らかな残存腫瘍は認め

Fig. 4 Post-operative T1-weighted axial (A) and coronal (B) imaging with Gd-DTPA showing radical resection of the tumor.

Post-operative left common carotid angiogram (C: lateral view, D: anteroposterior view; arterial phase, E: anteroposterior view; venous phase) showing disappearance of the dural arteriovenous fistula.

Fig. 5 Assumed vascularization of dural arteriovenous fistula that disappears after removal of the associated tumor; pre (A)– and post (C)–operative state.

Persistence of dural arteriovenous fistula after removal of the associated tumor; pre (B)– and post (D)–operative state.

*: fistula point, blue arrows: drainers, red arrows: feeders, brown arrows: thrombosed vessels, solid blue: venous sinus, solid brown: thrombosed sinus, Tu: tumor

られず (Fig. 4A, B), 脳血管撮影では TS-DAVF は消失 (Fig. 4C, D) しており, 横・S 状静脈洞は造影されなかった (Fig. 4E). 経過順調にて術後 2 週間で独歩退院し, 術後 1 年現在でも腫瘍の再増大や TS-DAVF の再発は認められていない.

考 察

DAVF は全頭蓋内血管奇形の約 10~15%⁵⁾を占め, その発生機序に関してはいまだ諸説あるが, 脳静脈洞血栓症や頭部外傷などの後に発生した報告が増えていることから最近では先天性説³⁾よりも後天性説を支持する論文が多い¹⁾²⁾⁴⁾¹⁰⁾. 本症例においても, 症例 2 で腫瘍再発時に初めて DAVF を認めたことはまさしくこの後天性説を強く示唆している. また 2 症例ともに, 腫瘍が静脈洞壁に浸潤し, 洞内にまで進入・閉塞していたことは術中所見で確認しており, DAVF の原因であることは想像に難くない. 本報告において考察すべき点は, ①症例 1 では初発の腫瘍浸潤とともに DAVF が発生している一方で, 症例 2 では腫瘍再発時に DAVF が併発している点, ②開頭部位 (術野) と fistula point が離れており fistula point に対する外科的な処置がなされていないにもかかわらず, 術後に DAVF が消失していた点にあると思われる. ①に関して, 後天性 DAVF の発現因子の一つに腫瘍浸潤による静脈洞閉塞が関与しているであろうことは容易に推測される. 発現機序としては sinus hypertension, sinus thrombosis, thrombophlebitis⁸⁾や tissue hypoxia による VEGF (vascular endothelial growth factor) などの血管促進因子の発現⁹⁾などが報告されているが, 症例 2 では手術操作が加わっているため医原性の関与⁶⁾⁷⁾も否定できない. すなわち, 後天性 DAVF の発生には, 腫瘍浸潤の程度や angiogenic stimulator の関与, さらに手術操作などの複合的な因子が複雑に関係していることが考えられる. また, 症例 2 においては初回の腫瘍発生時には DAVF を発現する因子 (環境) が十分でなかった可能性も考えられる. 過去の文献によると, 腫瘍に併発した後天性 DAVF では本症例を含めて髄膜腫が大半を占めており, 髄膜腫特有の hypervascular network が AV shunt の橋渡しの役割を成していることも考えられる. 次に②に関して, DAVF の治療は一般的に fistula point の遮断や内圧の上昇した静脈洞の摘出, reflux した cortical vein の硬膜流入部近傍での遮断などが挙げられるが, 本症例のごとく fistula point の処置なくして DAVF が消失した理由として, 付着部テントの処置が結果的に静脈洞の摘出と同様な処置につながったこと, 腫

瘍摘出により angiogenic stimulator や angiogenic activity が消失・低下したこと, 術操作による静脈洞の閉塞などが挙げられるが, その他の要因として, われわれは腫瘍周囲の血管構築にあると推察した. すなわち腫瘍 (特に髄膜腫のような hypervascular tumor) を介した DAVF には 2 つのタイプがあり, DAVF の feeder の大半が腫瘍に流入するタイプ (Fig. 5A) と腫瘍を介さず多くが DAVF に流入するタイプ (Fig. 5B) である. 前者は腫瘍摘出により retrograde に DAVF を構築しているほとんどの血管 (feeder, drainer とともに) が血栓化し, DAVF が消失する (Fig. 5C) が, 後者では腫瘍摘出によっても fistula が残存する (Fig. 5D). この推察によると, 症例 1 では腫瘍が増大するとともに静脈閉塞 (腫瘍塞栓) を起こし前者のタイプを形成し, 症例 2 では腫瘍再発・増大により静脈閉塞までに至り, 血流動態も初回と異なり前者のタイプに変化し DAVF を形成したと推測される. しかし術前に, 腫瘍の栄養血管の詳細な情報や, どちらのタイプに分類されるかを把握することは困難であり, かつ静脈洞の閉塞機転も影響していた可能性もあることから, この推察を裏付けるためには画像診断を含め, 今後さらなる症例の積み重ねが必要と思われる.

結 語

テント部髄膜腫摘出後に消失した TS-DAVF の 2 例を経験した. われわれは本症例を通じて, 後天性 DAVF の消失は, 手術などの医原的な要素以外に, DAVF を取り巻く血管構築が関与している可能性も考えられると推察した.

文 献

- 1) Ahn JY, Lee BH, Cho YJ, Joo JY, Lee KS: Dural arteriovenous fistula associated with meningioma: Spontaneous disappearance after tumor removal. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 43: 308-311, 2003.
- 2) Arnautović KI, Al-Mefty O, Angtuaco E, Phares LJ: Dural arteriovenous malformations of the transverse/sigmoid sinus acquired from dominant sinus occlusion by a tumor: Report of two cases. *Neurosurgery* 42: 383-388, 1998.
- 3) Barnwell SL, Halbach VV, Dowd CF, Higashida RT, Hieshima GB, Wilson CB: Multiple dural arteriovenous fistulas of the cranium and spine. *AJNR Am J Neuroradiol* 12: 441-445, 1991.
- 4) Horinaka N, Nonaka Y, Nakayama T, Mori K, Wada R, Maeda M: Dural arteriovenous fistula of the transverse sinus with concomitant ipsilateral meningioma. *Acta Neurochir* 145: 501-504, 2003.
- 5) Houser OW, Baker HL, Rhoton AL Jr, Okazaki H: Intracranial dural arteriovenous malformations. *Radiology*

- 105: 55-64, 1972.
- 6) Nabors MW, Azzam CJ, Albanna FJ, Gulya AJ, Davis DO, Kobrine AI: Delayed postoperative dural arteriovenous malformations: Report of two cases. *J Neurosurg* **66**: 768-772, 1987.
 - 7) Sasaki T, Hoya K, Kinone K, Kirino T: Postsurgical development of dural arteriovenous malformations after transpetrosal and transtentorial operations: Case report. *Neurosurgery* **37**: 820-824, 1995.
 - 8) Sakaki T, Morimoto T, Nakase H, Kakizaki T, Nagata K: Dural arteriovenous fistula of the posterior fossa developing after surgical occlusion of the sigmoid sinus: Report of five cases. *J Neurosurg* **84**: 113-118, 1996.
 - 9) Shweiki D, Itin A, Soffer D, Keshet E: Vascular endothelial growth factor induced by hypoxia may mediate hypoxia-initiated angiogenesis. *Nature* **359**: 843-845, 1992.
 - 10) Yokota M, Tani E, Maeda Y, Yamaura I: Meningioma in sigmoid sinus groove associated with dural arteriovenous malformation: Case report. *Neurosurgery* **33**: 316-319, 1993.

要 旨

テント部髄膜腫摘出後に消失した硬膜動静脈瘻の2例

郭 樟吾 市川 輝夫 瓜生 康浩 薦木 明美
岡田 富 宮原 宏輔 向原 茂雄 藤津 和彦

硬膜動静脈瘻の発生機序に関してはいまだ多くの議論があるが、最近では後天性説を支持する報告が散見される。また、後天性硬膜動静脈瘻の発生機序に関しても諸説が述べられているが、その消失機序を詳細に論じている文献は少ない。今回われわれは、テント部髄膜腫摘出後に消失した横・S状静脈洞硬膜動静脈瘻の2例を経験し、腫瘍に併発した後天性硬膜動静脈瘻を取り巻く血管構築が後天性硬膜動静脈瘻の消失に関与しているものと推察した。しかし、術前からその構築を把握することは困難であり、この推察を裏付けるためには画像診断を含め今後の症例の積み重ねが必要であると思われる。

脳外誌 20: 300-305, 2011

Editorial Comment

髄膜腫摘出後の硬膜動静脈瘻の消失

慶應義塾大学医学部脳神経外科 吉田一成

硬膜動静脈瘻(DAVF)の発生機序、病態の解明は、その治療戦略を考えるうえでも、大切である。ここで提示された2症例は、髄膜腫の浸潤による静脈洞の閉塞の後に発生したDAVFであり、その機序は推測の域を出ないものではあるが、静脈洞の閉塞による何らかの病態が、後天的にDAVFを発生させた明確な証拠である。また、その2症例において、腫瘍摘出後に、fistula pointを処理していないのにDAVFが消失したことは、本疾患の病態と治療戦略を考えるうえで、貴重な情報である。2症例ともに、静脈

洞の閉塞部位よりも、中枢側にfistula pointがあることは、注目すべき所見であり、本稿で述べられているさまざまな機序が想定され、その解明が俟たれる。また、本論文の主眼である、摘出後にDAVFが消失した機序であるが、それが解明されれば、本疾患の治療戦略を立てるうえで、重要な情報となる。何らかの機序で静脈洞の閉塞が進行し、fistula pointまで及んだのであれば、解釈は比較的単純であるが、考察されているようにそれ以外の機序も推察され、重要な問題を提起した論文となっている。