症例報告

自然消失した特発性椎骨動静脈瘻の1例

小林 隆 司 桑 山 直 也 山 谷 和 正
西 嶋 美知春 遠 藤 俊 郎 高 久 晃

Arteriovenous Fistula of the Vertebral Artery with Spontaneous Regression : A Case Report

by

Takashi Kobayashi, M.D., Naoya Kuwayama, M.D., Kazumasa Yamatani, M.D.,
Michiharu Nishijima, M.D., Shunro Endo, M.D., and Akira Takaku, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Toyama Medical and Pharmaceutical University

The authors report a rare case with arteriovenous fistula (AVF) at V3 portion of the left vertebral artery with spontaneous regression. A 33-year-old woman came to our hospital complaining of a headache. She showed no neurologic abnormality but a vascular bruit was noted on her left mastoid region. Angiography revealed the AVF at the left vertebral artery emptying into the surrounding venous system. Little steal phenomenon was noted from the contralateral vertebral artery, although the filling of the basilar artery from the left vertebral artery was poor. Subsequently she was observed without any interventional treatment for 2 months until the follow-up angiography was performed, which revealed spontaneous regression of the AVF with residual arterial pouch at the orifice of the AVF.

(Received August 1, 1994, accepted September 8, 1994)

Key words : arteriovenous fistula, vertebral artery, spontaneous regression

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 4 : 303-306, 1995

緒 言

椎骨動脈に生ずる single-hole の動静脈瘻 (AVF) は、外傷性のものと特発性のものが報告されているが、いずれにしても稀な疾患である。われわれは左椎骨動脈 V3 部に生じた特発性動静脈瘻が経過中に自然消失した例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 33 歳, 女性

主 訴 : 頭痛

家族歴・既往歴 : 外傷を含め特記すべき事項はない。

現 症 : 25 歳ころより閃輝暗点を伴う頭痛があり、1993 年 6 月 10 日、精査を希望し来院した。

検査所見 : 神経学的異常所見はなかったが、左乳様突起下に心拍に一致する血管雑音が聴取された。CT scan, MRI にて左前頭葉皮質下に、海綿状血管腫を疑わせる所見があったため、初診より 1 カ月後に血管撮影を施行したところ、左椎骨動脈 V3-V4 移行部から周辺静脈 (傍脊椎静脈叢、椎骨静脈、深頸静脈) に流入する AVF を認めた (Fig. 1)。瘻孔より遠位側椎骨動脈の造影は不十分であった。右椎骨動脈造影では、椎骨脳底動脈接合部を介して AVF がわずかに造影されたが、頭蓋内の filling は良好であった (Fig. 2)。頸椎およびその周辺の支持組織には異常がなく、また外傷の既往もないため特発性

富山医科薬科大学脳神経外科 / 〒930-01 富山市杉谷 2630 (連絡先: 小林隆司)

Address reprint requests to : Takashi Kobayashi, M.D., Department of Neurosurgery, Toyama Medical and Pharmaceutical University, 2630 Sugitani, Toyama-shi, Toyama 930-01, Japan

Fig. 1 Left vertebral injection
The AV fistula from the left vertebral artery emptying into the paravertebral venous plexus was demonstrated. Note the intracranial filling is very poor (arrows : draining veins, asterisk : left vertebral artery).
A : lateral view B : left anterior oblique view

Fig. 2 Towne's view of the right vertebral injection
There is a retrograde flow (arrow) into the AV fistula via left vertebral artery.

Fig. 3 Left vertebral injection after 2 months
Note the AV fistula was occluded forming the aneurysmal arterial pouch at the entrance site of the fistula.
A : Towne's view
B : left anterior oblique view

動静脈瘻と診断した。AVF に起因すると思われる症状はなく、また血管雑音も耳鳴としては自覚されないため、保存的に経過観察した。

経過：その後患者は著変なく経過したが、初診から2ヵ月後に血管撮影にて再検したところ、AVF はその瘻孔と思われる部位に動脈瘤様の pouch を残した形で完全に閉塞していた (Fig. 3)。現在経過観察中である。

考 察

1. 病 因

椎骨動脈に生じる single hole の動静脈瘻はこれまでに百数十例が報告されている。症因は、大きく外傷性と

特発性に分けられる⁵⁾⁸⁾¹²⁾¹⁵⁾¹⁷⁾¹⁸⁾。まず、外傷性 AVF の原因は鋭的な損傷と鈍的な損傷に分けられる。鋭的な損傷としては、最も多く報告されているのがナイフによるもので、次いで銃によるもの、さらに医原性のもの (血管撮影時の穿刺、頸部の手術、針治療など) も報告されている。鈍的な損傷としては頸部の打撲、骨折で転位した骨によるものなどが報告されている。特発性の原因としては、血管壁の脆弱性に病因が求められるものが報告されている。すなわち fibromuscular dysplasia (FMD) や, neurofibromatosis などである¹⁾³⁾¹¹⁾¹³⁾²⁰⁾。FMD は、動脈瘤や動脈解離を合併することによく知られているが、これが静脈叢周辺で破裂することにより AVF を生ずるとされている。これら以外に小児期に発症し先天性

とされる AVF の報告もある⁷⁾⁸⁾²⁴⁾²⁵⁾。さらに、病因学的説明がつかず、原因不明とされる症例も多く存在するようである¹⁵⁾。われわれの症例も明らかな外傷の既往がなく、また積極的に FMD や neurofibromatosisなどを疑う所見もないため、原因不明とせざるを得ない。

2. 発生部位

発生部位に関してはやや左側に多い¹⁸⁾ようであるが、両側に発生した症例も報告されている²⁾。外傷性のものは横突孔を通過する部位、すなわち V2 部に多く、その中でも特に C5 以下の報告が多い²⁾。一方、特発性のものは第 1 頸椎の高さ、すなわち V3, V4 部に多いと報告されている⁸⁾¹⁸⁾。われわれの症例でもこれまでの報告と同様、左椎骨動脈 V3 部に生じている。

4. 症 状

症状は拍動性の耳鳴りが最も多く⁸⁾⁹⁾¹⁵⁾¹⁶⁾、拍動性の頭痛、めまい、頸部痛などが主である。そのほか乳様突起下の血管雑音、振戦、腫瘍の触知、椎骨脳底動脈循環不全様の症状²³⁾、神経脱落症状¹⁸⁾、神経根症状¹⁹⁾、静脈高血圧などの報告があるが、当症例のように無症状の例も多く報告されている²⁾⁶⁾¹⁰⁾²¹⁾。無症状の場合、乳様突起下の聴診が診断上非常に重要と思われる。また、color doppler flow ultrasound も確定診断に有用である。

5. 自然消失

AVF が経過中に自然消失したという例は、数例報告されている¹⁴⁾¹⁵⁾。その機序として静脈側の血栓化、血圧の異常な低下、造影剤の注入血栓などによる塞栓症などが指摘されている²⁾⁴⁾¹⁴⁾¹⁵⁾²²⁾。われわれの症例では静脈側の血栓化、あるいは造影剤の注入がその閉塞になんらかの形で作用したと考えている。

文 献

- 1) Bahar S, Chiras J, Carpena JP, Meder JF, Bories J : Spontaneous vertebrovertebral arteriovenous fistula associated with fibro-muscular dysplasia. *Neuroradiology* 26 : 45-49, 1984.
- 2) Beaujeux RL, Reizine DC, Casasco A, Aymard A, Rüfenacht D, Khayata M, Riché MC, Merland JJ : Endovascular treatment of vertebral arteriovenous fistula. *Radiology* 183 : 361-367, 1992.
- 3) Denas WR, Block S, Leibrock L, Berman BM, Skulterty FM : Arteriovenous fistula in patients with neurofibromatosis. *Radiology* 144 : 103-107, 1982.
- 4) Foureier D, Rodesch K, Flodmark O, Lasjaunias P : Acquired mural (dural) arteriovenous shunts of the vein of Galen ; report of 4 cases. *Neuroradiology* 33 : 52-55, 1991.
- 5) Freitag HJ, Grzyska U, Zeumer H : The use of the "cross over technique" in the management of a traumatic vertebro-vertebral fistula ; Case reports. *Neuroradiology* 31 : 174-176, 1989.
- 6) Gaensler EHL, Jackson DE, Halbach VV : Arteriovenous fistulas of the cervicomedullary junction as a cause of myelopathy ; radiographic findings in two cases. *AJNR* 11 : 518-521, 1990.
- 7) Godersky JC, Menezes AH : Intracranial arteriovenous anomalies of infancy ; Modern Concepts. *Pediatr Neurosci* 13 : 242-250, 1987.
- 8) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB : Treatment of vertebral arteriovenous fistulas. *AJNR* 8 : 1121-1128, 1987.
- 9) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, Hardin CW : Arteriovenous fistula of the internal maxillary artery ; treatment with transarterial embolization. *Radiology* 168 : 443-445, 1988.
- 10) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, Hardin CW, Dowd CF, Barnwell SL : Transarterial occlusion of solitary in tracerebral arteriovenous fistulas. *AJNR* 10 : 747-752, 1989.
- 11) Hieshima GB, Cahan LD, Mehringer CM, Bentson JR : Spontaneous arteriovenous fistula of cerebral vessels in association with fibromuscular dysplasia. *Neurosurgery* 18 : 454-458, 1986.
- 12) Horton JA, Jungreis CA, Stratemeyer PH : Sharp vascular calcification and acute balloon rupture during embolization. *AJNR* 12 : 1070-1073, 1991.
- 13) Kamiyama K, Endo S, Horie Y, Kosyu K, Takaku A : Neurofibromatosis associated with intra- and extracranial aneurysms and extracranial vertebral arteriovenous fistula. *No Shinkei Geka* 13 : 875-880, 1985.
- 14) Kim YH, Gildenberg PL, Duchesneau PM : Angiographic evidence of spontaneous closure of nontraumatic arteriovenous fistula of the vertebral artery ; case report. *J Neurosurg* 38 : 658-661, 1973.
- 15) Kubota M, Watanabe O, Takase M, Hashimoto T : Spontaneous disappearance of arteriovenous fistula between the vertebral and deep cervical vein ; case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 32 : 84-87, 1992.
- 16) Lawadahl RB, Routh WD, Vitek JJ, McDowell HA, Gross GM, Keller FS : Chronic arteriovenous fistulas masquerading as arteriovenous malformation : Diagnostic consideration and therapeutic implications. *Radiology* 170 : 1011-1015, 1989.
- 17) Mourao GS, Hodes JE, Gobin YP, Casasco A, Aymard A, Merland JJ : Curative treatment of scalp arteriovenous fistulas by direct puncture and embolization with absolute alcohol ; report of 3 cases. *J Neurosurg* 75 : 634-637, 1991.
- 18) Nagashima CMD, Iwasaki TMD, Kawanuma S, Sakaguchi A, Kamisasa A, Suzuki K : Traumatic arteriovenous fistula of the vertebral artery with spinal cord symptoms ; case report. *J Neurosurg* 46 : 681-687, 1977.
- 19) Olson RW, Baker HL Jr, Svien HJ : Arterio-venous fistula ; a complication of vertebral angiography ; a report of a case. *J Neurosurg* 20 : 73-75, 1963.
- 20) Parkinson D, Hay R : Neurofibromatosis. *Surg Neurol* 25 : 109-113, 1986.
- 21) Partington MD, Rüfenacht DA, Marsh WR, Piepgras DG : Cranial and sacral dural arteriovenous fistulas as a cause of myelopathy. *J Neurosurg* 76 : 615-622, 1992.

- 22) Santosh C, Teasdale E, Molyneux A : Spontaneous closure of an intracranial middle cerebral arteriovenous fistula. *Neuroradiology* 33 : 65-66, 1991.
- 23) Smith M, Ruse EJ, Levy R, Crowell RM : Transcatheter obliteration of a cerebellar arteriovenous fistula with platinum coils. *AJNR* 11 : 1199-1202, 1990.
- 24) Tomlinson FH, Piegras DG, Nichols DA, Rufenacht DA, Kaste SC : Remote congenital cerebral arteriovenous fistulae associated with aortic coarctation : case report. *J Neurosurg* 76 : 137-142, 1992.
- 25) Yang PJ, Halbach VV, Higasida RT, Stanger P, Hieshima GB : Intravascular embolization of a congenital subclavian arteriovenous fistula. *AJNR* 10 : S25-S27, 1989.

要 旨

自然消失した特発性椎骨動静脈瘻の1例

小林 隆司 桑山 直也 山谷 和正 西島美知春
遠藤 俊郎 高久 晃

椎骨動脈に生ずる動静脈瘻 (AVF) は非常に珍しく、外傷によって生ずるものが多い。われわれは左椎骨動脈に生じた非外傷性 AVF が、経過観察中に自然消失した症例を経験したので報告する。症例は 33 歳の女性で頭痛を主訴に来院した。神経学的所見はなく、左乳突部に血管雑音が聴取された。血管造影にて左椎骨動脈 V3 部から周辺の静脈叢に流出する AVF と診断した。対側からの steal はわずかで、また AVF に起因すると思われる症状もないため、保存的に経過観察した。2 カ月後の血管造影上、AVF は椎骨動脈からの流入部に動脈瘤様の pauch を残した形で閉塞していた。

脳外誌 4 : 303-306, 1995