症例報告

自然消失をみた非穿通性外傷性椎骨動静脈瘻の1例

小林英一 小林繁樹 大石博通 渡辺建司
景山雄介 中村弘 古口徳雄* 八木下敏志行*
佐藤章 渡辺義郎

The Spontaneous Disappearance of a Non-penetrating Traumatic Vertebral Arteriovenous Fistula : Case report

by

Eiichi Kobayashi, M.D., Shigeki Kobayashi, M.D., Hiromichi Ohishi, M.D.,
Kenji Watanabe, M.D., Yusuke Kageyama, M.D., Hiroshi Nakamura, M.D.,
Norio Koguchi, M.D., Toshiyuki Yagishita, M.D., Akira Satoh, M.D., and
Yoshirou Watanabe, M.D.

from

Chiba Emergency Medical Center

Reported is a case of a non-penetrating traumatic vertebral arteriovenous fistula (AVF) that disappeared spontaneously within four months. Among traumatic vertebral AVFs, a non-penetrating type is rare. It also should be noted that a vertebral AVF can develop from a relatively slight injury such as cerebral concussion, and that the possible reason that may account for the development of AVFs due to a blunt injury is the stretching or an avulsion of the arterial branches.

In a review of the literature that included this case, only 8 cases of a spontaneous disappearance of a vertebral AVF have been reported. Seven of these 8 cases involved females with no visible vertebral bone fracture. Further, more than a month elapsed before the spontaneous disappearance of all 8 AVFs. Based on the author's experience and findings, when an AVF is suspected in asymptomatic or slightly symptomatic cases, if intravascular surgery must be delayed for some reason, vertebral angiography should be performed a few months after AVF onset and the patient kept under careful clinical observation.

(Received December 15, 1994 ; accepted May 9, 1995)

Key words : arteriovenous fistula, vertebral artery, spontaneous disappearance, natural history, blunt injury

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 4 : 558-563, 1995

はじめに

椎骨動静脈瘻は比較的稀な疾患で、その半数近くが頭頸部外傷に起因する。さらにその受傷機転は、穿通性またはカテーテル穿刺に伴う医原性がほとんどで、非穿通

性鈍的外傷に続発するものは少数の報告をみるにすぎない¹⁴⁾。また、その治療法に関しては、近年の intravascular surgery の進歩と相まって、balloon や coil を用いた瘻孔塞栓術が主流になりつつある¹⁷⁾が、その自然歴は不明な点が多く、症状の軽微なものでは治療法の選択にあ

千葉県救急医療センター脳神経外科／〒261 千葉市美浜区磯辺 3-32-1 (連絡先：小林英一)

Address reprint requests to : Eiichi Kobayashi, M.D., Department of Neurosurgery, Chiba Emergency Medical Center, 3-32-1 Isobe, Mihama-ku, Chiba-shi, Chiba 261, Japan

*同神経内科

A/B

Fig. 1

- A : A plain cervical X-ray shows marked enlargement of the retropharyngeal space at the C2 level (15 mm).
B : A cervical tomogram reveals enlargement of the basion-dental distance (12 mm).

A : early arterial phase

B : late arterial phase

Fig. 2 A right anterior oblique view angiogram of the first left vertebra shows a fistulous communication between the vertebral artery and the vertebral venous plexus (arrows).

たって困惑する場面も少なくない。最近われわれは、非穿通性鈍の外傷に続発し、4カ月の経過で自然消失をみた椎骨動静脈瘻の1例を経験したので、その自然歴についての若干の文献的考察とともに報告する。

症 例

患 者：6歳，女兒

主 訴：意識障害，頸部痛

家族歴・既往歴：特記すべきものなし。

現病歴：1994年4月3日，歩行中バイクにはねられ受傷，数分の意識消失があった。受傷後約1時間で当センターへ紹介入院となった。

入院時所見：Glasgow Coma Scale=E1V3M5，明らかな局所神経症状は認めなかった。左前頭側頭部，顔面，両膝に打撲痕を認めた。翌日には意識清明となり，頸部

痛を訴えるようになったが，一過性で消失した。同時に両上下肢末梢のしびれも訴えるようになった。他覚的には運動麻痺，感覚障害，深部反射異常などの上部頸髄障害を疑わせる所見はなく，頸部での bruit も聴取されなかった。頸部可動域は疼痛のため著明に制限されていた。

神経放射線学的所見：頸椎単純撮影側面像にて，環椎歯突起間距離は3mmと正常範囲内であったが，retropharyngeal space は15mmと著明な拡大が認められ (Fig. 1A)，透視下における動態撮影では環軸椎間の不安定性が，さらに断層撮影矢状断にて basion-dental distance の開大 (12mm) が認められた (Fig. 1B)。MRI 上は，脊椎管腔は正常に保たれており，明らかな脊髓損傷は認められなかった。

椎骨動脈系損傷の検索の目的で脳血管撮影が施行され，左椎骨動脈撮影にて，椎骨動脈 second segment 遠位端より anterior meningeal branch を介し anterior

Fig. 3 A left vertebral angiogram via an anterior meningeal branch shows that an arteriovenous fistula (large arrow) is located at the C2-3 level.

Fig. 4 A : A-P view B : lateral view
A contralateral vertebral angiogram shows no reverse flow to the fistula.

internal vertebral venous plexus へと環流する椎骨動脈静脈瘻が確認された (Fig. 2)。瘻は C2-3 椎間レベルにあり、動脈相早期より静脈叢の出現をみた (Fig. 3)。また、対側椎骨動脈よりの reversed flow は認めなかった (Fig. 4)。血管撮影からは、anterior meningeal branch は細く、balloon occlusion は不可能と考えられた。

入院後経過：椎骨動脈静脈瘻に関するかぎり、bruit、盗血症状、静脈環流異常に関する症状などは認められず、環軸椎間不安定性に対し halo vest 装着にて経過観察とした。この間、新たな症状の進行はみず、頸部痛、四肢のしびれは消失した。また、血液データ上は、特に異常を認めなかった。4 カ月後の 8 月 1 日、halo vest のはずれるのを待って再度椎骨動脈撮影を施行した。椎骨動脈静脈瘻はきれいに消失していた (Fig. 5)。

考 察

椎骨動脈静脈瘻は、Elkin ら⁶⁾の報告以来、多数の散発例の報告がみられ、特に、脳血管撮影を頸部直接穿刺にて施行していた 1950 年代、60 年代に報告が相次いだ¹¹⁾。発生原因については、外傷性および医原性が併せて 41~60% を占め³⁾⁷⁾¹⁶⁾、その他では特発性、先天性、neurofibromatosis⁹⁾ や fibromuscular dysplasia¹⁵⁾ に伴うものが報告されている。外傷性、医原性に限ってみると、穿通性外傷がほとんどを占めることはよく知られており、西田ら¹⁴⁾の文献的考察でも、非穿通性鈍的外傷に後発するものは過去の報告例 99 例中 9 例にすぎなかった。このような事実から、動脈静脈瘻発生には、穿刺や骨折による直接の血管損傷を重視するむきもあるが、本症例のごとく、脳振盪程度の軽微な鈍的外傷でも生じる可能性があることには留意すべきである。

Fig. 5 An angiogram taken 4 months after the injury shows no fistula.

Table 1 Summary of 8 cases of a spontaneous disappearance of a vertebral arteriovenous fistula

Authors	Year	Age	Sex	Cause	Site	Vertebra bone injury	Period to disappearance
Sher, et al ¹⁸⁾	1966	38	F	iatrogenic	C4	non	several months
Newton, et al ¹³⁾	1966	33	F	iatrogenic	C5	non	2 years and 9 months
Bergquist ⁴⁾	1971	52	F	iatrogenic	C5	non	two and a half years
Kim, et al ¹⁰⁾	1973	27	F	spontaneous	C4	non	3 years
Baleriaux-Waha, et al ²⁾	1976	unknown		iatrogenic	C5	non	11-14 months
Reizine, et al ¹⁶⁾	1985	70	F	spontaneous	C1-2	non	several months
Kubota, et al ¹²⁾	1992	58	F	iatrogenic	not clear	non	1 month
Our case	1994	6	F	blunt injury	C2-3	non	4 months

F : female

All iatrogenic cases were due to a direct cervical puncture on angiography or by needles during bronchial asthma treatment.

頸椎横突孔内を通る椎骨動脈は、全周を骨により保護されているが、同時に海綿静脈洞のように静脈叢に取り囲まれており、ひとたび損傷が起こると受傷機転にかかわらず動静脈瘻を発生しやすいと考えられる。自験例のような鈍的外傷に伴う動静脈瘻の発生機序に関しては、可動性の大きい上位頸椎に好発すること¹⁴⁾、本症例のように損傷部位と動静脈瘻の位置との解離を認める場合があることより、椎骨動脈本幹の直接損傷よりも、meningeal branch や muscle branch の伸展、引抜き損傷の関与が推察される。つまり穿通性外傷とは本質的に病態が異なる可能性があり、その予後、治療に関しても後述のごとく特別な注意が必要となろう。

次に自然歴に関してであるが、椎骨動静脈瘻が外傷性動静脈瘻の3%にすぎず¹⁾、また保存的治療にて追跡した大規模な報告がないため、不明な点が多い。Shumackerら¹⁹⁾の報告によると、他の部位を含めた一般の動静脈瘻の自然閉鎖率は2%であり、大方の椎骨動静脈瘻は周囲の血流を集積し、徐々に増大すると考えられてい

る⁵⁾¹²⁾¹⁹⁾。そのため経過とともに bruit の増大、椎骨脳底動脈系の虚血の進行、脊髄圧迫症状、心不全を呈し、このような症候性で症状の進行を認めるものに対しては近年積極的に血管内手術が施行され、良好な成績が報告されている³⁾⁷⁾⁸⁾。治療のタイミングを誤ると、シャント量増大のためかえって治療に難渋する場合も十分考えられるが、本症例のように、無症候性のもや症状の軽微なものには、積極的な治療が躊躇される場面もある。渉猟し得た文献上、瘻孔の自然閉鎖が血管撮影で確認されたものは、本症例を含め8例であった (Table 1) ²⁾⁴⁾¹⁰⁾¹²⁾¹³⁾¹⁶⁾¹⁸⁾。発生原因別にみると、椎骨動脈または頸動脈穿刺や針治療に伴う医原性が5例と最も多く、鈍的損傷に続発するものは自験例のみであった。しかし、これは、椎骨動静脈瘻が穿通性外傷に頻発することを鑑みると、自然治癒が特に穿通性外傷に多いということを示すものではなく、むしろ鈍的外傷では症状が顕在化する前に自然治癒している可能性がある。興味深いことに、1例の不明例を除き全例が女性であり、明らかな椎骨の骨傷を

認めたものはなかった。また、自然消失が画像上確認されるまでの期間は、1カ月～3年と比較的長期を要している。

自然消失の原因に関しては、瘻孔の血栓化、周囲組織の修復、血行力学的変化などの関与が推測されている。本症例は、小児例であり、シャント量が比較的少なく、また外固定による確実な頸部安静が確保できたことなど、特殊な条件が重なったことが好結果をもたらしたと考えられるが、症状の軽微な非進行例に関しては、保存的治療の可能性を示唆するものでもある。特に鈍的外傷に起因する症例では、穿通性外傷によるものと異なり、椎骨動脈分枝の引き抜き損傷により生じている可能性があり、瘻孔が小さく、椎骨動脈本幹の血流も温存されている場合も少なからず存在する。治療法の選択には、自然緩解も考慮に入れ、十分慎重でなければならない。その際、動静脈瘻は、増悪するにせよ自然軽快するにせよ、月単位の緩徐な変化を示すことが多いため、綿密な臨床症状の観察とともに、数カ月後の血管撮影が肝要であると考えらる。

文 献

- 1) Ammirati M, Mirzai Sh, Samii M : Vertebral arteriovenous fistulae. Report of two cases and review of the literature. *Acta Neurochir (Wien)* **99** : 122-126, 1989.
- 2) Baleriaux-Waha D, Jeanmart L, Brihay J, Henneaux J : Traumatic arteriovenous fistulas of the vertebral artery. *Neuroradiology* **11** : 83-85, 1976.
- 3) Beaujeux RL, Reizine DC, Casasco A, Aymard A, Rufenacht D, Khayata MH, Riche MC, Merland JJ : Endovascular treatment of vertebral arteriovenous fistula. *Radiology* **183** : 361-367, 1992.
- 4) Bergquist E : Bilateral arteriovenous fistulae. A complication of vertebral angiography by direct percutaneous puncture. *Br J Radiol* **44** : 519-523, 1971.
- 5) Chou SN, Story JL, Seljeskog E : Further experience with arteriovenous fistulas of the vertebral artery in the neck. *Surgery* **62** : 779-788, 1967.
- 6) Elkin DC, Harris MH : Arteriovenous aneurysm of the vertebral vessels. Report of ten cases. *Ann Surg* **124** : 934-951, 1946.
- 7) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB : Treatment of vertebral arteriovenous fistulas. *AJR* **150** : 405-412, 1988.
- 8) Higashida RT, Halbach VV, Tsai FY, Norman D, Pribram HF, Mehringer CM, Hieshima GB : Interventional neurovascular treatment of traumatic carotid and vertebral artery lesions. *AJR* **153** : 577-582, 1989.
- 9) 神山和世, 遠藤俊郎, 堀江幸男, 甲州啓二, 高久 晃 : 脳動脈瘤, 頭蓋外内頸動脈瘤, 頭蓋外椎骨動静脈瘻を伴った Neurofibromatosis の 1 例. *脳外* **13** : 875-880, 1985.
- 10) Kim YH, Gildenbeg PL, Duchesneau PM : Angiographic evidence of spontaneous closure of nontraumatic arteriovenous fistula of the vertebral artery. *J Neurosurg* **38** : 658-661, 1973.
- 11) Kornmesser TW, Bergan JJ : Anatomic control of vertebral arteriovenous fistulas. *Surgery* **75** : 80-86, 1974.
- 12) Kubota M, Watanabe O, Takase M, Hashimoto T : Spontaneous disappearance of arteriovenous fistula between the vertebral artery and deep cervical vein. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **32** : 84-87, 1992.
- 13) Newton TH, Darroch J : Vertebral arteriovenous fistula complicating vertebral angiography. *Acta Radiol Diag* **5** : 428-440, 1966.
- 14) 西田正博, 島 健, 村松茂次郎, 岡田芳和, 山田 徹, 山根冠児, 沖田進司, 加川玲子 : 環椎骨折, 軸椎脱臼骨折に続発した非穿通性椎骨動静脈瘻の 1 例. *日労医学会誌* **37** : 293-299, 1989.
- 15) Reddy SVR, Karnes WE, Earnest F, Sundt TM : Spontaneous extracranial vertebral arteriovenous fistula with fibromuscular dysplasia. *J Neurosurg* **54** : 399-402, 1981.
- 16) Reizine D, Laouiti M, Guimaraens L, Riche MC, Merland JJ : Vertebral arteriovenous fistulas. Clinical presentation, angiographical appearance and endovascular treatment. A review of twenty-five cases. *Ann Radiol* **28** : 425-438, 1985.
- 17) Sadasivan B, Mehta B, Dujovny M, Malik GM, Ausman JI : Balloon embolization of nontraumatic vertebral arteriovenous fistulae in children. *Surg Neurol* **32** : 126-130, 1989.
- 18) Sher MH, Meyer NI, Lenhardt HF, Trummer MJ : Arteriovenous fistula involving the vertebral artery. Report of three cases. *Ann Surg* **163** : 406-413, 1966.
- 19) Shumacker HB, Wayson EE : Spontaneous cure of aneurysms and arteriovenous fistulas with some notes on intrasaccular thrombosis. *J Surg* **79** : 532, 1950.

要 旨

自然消失をみた非穿通性外傷性椎骨動静脈瘤の1例

小林 英一 小林 繁樹 大石 博通 渡辺 建司
 景山 雄介 中村 弘 古口 徳雄 八木下敏志行
 佐藤 章 渡辺 義郎

4カ月の経過を経て自然消失した非穿通性鈍的外傷による椎骨動静脈瘤の1例を報告した。外傷性椎骨動静脈瘤の中でも、非穿通性外傷に起因するものは稀で、比較的軽度の骨傷を伴わない鈍的外傷にも発生することには注意を要する。このような鈍的外傷に起因する椎骨動静脈瘤の発生原因として、椎骨動脈の筋枝、硬膜枝の伸展、引き抜き損傷が推測された。また、本疾患の自然消失報告例は、自験例も含め過去8例あり、不明の1例を除きいずれも女性で、頸椎骨損傷を伴わないものであった。自然消失には1カ月～3年の期間を要しており、症状の軽微で、経過観察が可能な症例にかぎっては、保存的治療も考慮すべきで、綿密な臨床症状の経時的観察とともに、数カ月後の血管撮影が重要と考えられた。

脳外誌 4: 558-563, 1995

脳神経外科ジャーナル

次号予告

第5巻 第1号 1996年1月

特集／てんかんの治療

てんかんの治療—薬物の選択— ……弘前大学神経精神科 兼子 直, 他
 難治てんかんの診断と手術 ……東京都立神経病院 清水 弘之, 他

原 著

外傷性脳内血腫の形成に関する実験的研究

—Microangiography による脳血管構築の観察と脳血流量の変化— ……聖マリアンナ医科大学 坂本 辰夫, 他
 転移性脳腫瘍に対する術中照射療法の治療成績 ……神奈川県立がんセンター 林 明宗, 他
 脳動脈瘤クリッピング術後の再発例・新生例の検討 ……千葉大学 久保田基夫, 他

症例報告

血液透析患者における脳腫瘍摘出術と周術期管理—聴神経腫瘍の1手術例— ……児島中央病院 木村知一郎, 他
 大動脈壁血栓による一時的胸髄虚血発作の1例 ……奈良県立医大 山田 與徳, 他
 Brown-Séquard's syndrome を呈した刺創による脊髄損傷の1例 ……小牧市民病院 丹羽 政宏, 他
 脳梁形成不全を伴った視床下部過誤腫の1例 ……国立大阪南病院 浦西龍之介, 他
 傍矢状部硬膜動静脈奇形の1例 ……国立大阪南病院 浦西龍之介, 他
 急速に進行した小児モヤモヤ病の1例—MRA による経時的追跡— ……山梨医科大学 杉本 正夫, 他

短 報

顕微鏡下手術用バイオネット型単極式電気メス—特にリングメスについて— ……九州大学 松島 俊夫, 他

編集の都合上内容が若干異なる場合がありますのでご了承ください。