◆ 症例報告 ◆

超選択的カテーテル撮影で診断がついた
前下小脳動脈遠位部の破裂微小 AVM の 1 例三木 健嗣¹⁾ 野口 直樹¹⁾ 森 恩¹⁾ 山田 哲久¹⁾
有村 公一²⁾ 甲斐 康稔¹⁾ 名取 良弘¹⁾

要旨：急性期に診断がつかなかった破裂 micro arteriovenous malformation (AVM) の 1 例を報告する。症例は 19 歳女性、小脳出血を認め、造影検査を施行するも出血源は認めなかった。時期をおいた血管造影検査で瘤状構造物を認め、術中のマイクロカテーテル造影で静脈の早期描出を認めたため、静脈瘤を伴う破裂 micro AVM と診断した。同病変に対して栄養動脈塞栓を行い、血管奇形の描出はなくなった。破裂 micro AVM では時期をおいた検査が必要であり、病態把握にはマイクロカテーテル造影が肝要である。また、治療は n-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) を用いた栄養動脈塞栓術が有用である。

Key words: micro arteriovenous malformation, cerebellar hemorrhage, NBCA

はじめに

若年者における脳出血では何らかの血管奇形を伴うことが多く、その一つとして AVM が挙げられる。AVM の中でも、nidus 直径が 1 cm 以下あるいは early draining vein のみ描出される場合、micro AVM に分類され全体の約 7% をしめ¹⁾、小さいながらも脳出血の原因となる^{2,3)}。また、急性期には画像検査で出血源が診断つかないことがあり、時期をおいた検査が望ましい。さらに詳細な病態はマイクロカテーテル撮影で初めて把握できることがある。今回われわれは、急性期には出血源の診断がつかず、マイクロカテーテル撮影で初めて病態が把握できた micro AVM の 1 例を経験した。また、治療は NBCA による栄養動脈塞栓術が著効した。文献的考察を踏まえて報告する。

症 例

患者：19 歳、女性
主訴：後頭部痛
既往歴：特記事項なし

現病歴：数日前から頭痛があり、アルバイト中に突然後頭部痛が増強し嘔吐した。前医を受診し頭部 CT で左小脳半球に出血性病変を認めたため当院に搬送された。

入院時現症：Japan Coma Scale (JCS) II-10

ピーク時の 4/10 程度の頭痛はあるものの、明らかな神経脱落所見なし。

生活歴：喫煙歴なし

家族歴：特記事項なし

内服薬：特記事項なし

初診時画像所見：頭部 CT：左小脳半球に 40×18×15 mm の出血を認め、周囲に浮腫を伴っていた。3DCTA を施行したが明らかな動脈瘤や血管奇形は認めなかった (Fig. 1A–C)。頭部 MRI：CT と同様の部位に出血性病変は認めるものの、血管奇形は認めなかった (Fig. 1D)。

入院後経過：若年の脳出血であり、血管奇形などの存在を疑い、3-dimensional CT angiography (3DCTA) や造影 MRI を施行したが明らかな出血源は認めなかった。入院時に妊娠の可能性が否定できなかったため、それ以上の検査は行わず、収縮期血圧を 140 mmHg 以下にコントロールし、降圧管理を行った。新規出血や神経所見の増悪を認めることなく経過した。その後妊娠が否定できたため、入院後 11 日目に血管造影検査を施行した。椎骨動脈撮影にて左 anterior inferior cerebellar artery (AICA) 遠位部に瘤状の血管異常を認めたため (Fig. 2)、distal AICA 動脈瘤破裂による小脳出血と診断した。瘤は大き

¹⁾株式会社麻生飯塚病院脳神経外科

²⁾九州大学大学院医学研究院脳神経外科

(2019 年 1 月 24 日受付, 2019 年 4 月 14 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10708

Fig. 1 頭部単純 CT では左小脳半球優位に血腫を認め、血腫の大きさは 40×18 mm であった(A). 造影 CT では明らかな血管奇形や動脈瘤を認めなかった(B, C). 造影 MRI でも同様に AVM などを疑う血管奇形は認めなかった(D).

さが 2.7 mm であり、場所は AICA の meatal loop よりも distal であった。過去には distal AICA の瘤内塞栓術の報告があるが⁴⁾、本症例では、分岐部から距離があること、AICA 本幹自体が細いことから、瘤内塞栓術ではなく NBCA による親血管閉塞術を施行する方針とした。入院 12 日目に血管内治療を施行し、治療は 4.2Fr の Fubuki(朝日インテック J セールス、東京)を右椎骨動脈に留置し、Marathon(Medtronic, USA)/Tenrou 1014(カネカメディックス、大阪)の組み合わせでマイクロカテーテルを誘導することとした。Distal AICA まで Marathon を上げて選択造影を行う(超選択的カテーテル撮影)と、medullary vein が動脈相で描出され、tentorial sinus へ流出していた。Feeder が AICA、drainer が medullary vein であり、同部位に瘤状構造物を認めていた。毛細血管相で明瞭に描出されており、瘤状構造物は静脈瘤であると判断し、静脈瘤を伴う micro AVM と診断した(Fig. 3)。本症例は micro AVM のなかでも single feeder type であり、NBCA による TAE で完治可能と判断したため、治療方針は変更しなかった。AICA の可能な限り distal にマイクロカテーテルを進め、working angle を LAO55 度、CAU 10 度として、そこから NBCA 20% を 0.07 ml 注入したところ、nidus と想定される部位まで到達し、AVM および静脈瘤の描出はなくなった(Fig. 4)。術後 CT では新規出血はなく、血腫腔は造影剤の漏出を認めた。術

後 CT から推測すると、キャストは medullary vein から tentorial sinus 手前約 5 mm ほどの位置まで入ったと考えられた(Fig. 5A, B)。治療後に新規梗塞や神経脱落所見なく経過は良好であり、術後 8 日目に自宅退院となった(Fig. 5C)。

考 察

本症例は、急性期に診断がつかなかったものの、時期をおいたマイクロカテーテル撮影で病態がはっきりした micro AVM の症例であった。一般に、若年で発症する脳出血は珍しく、背景に AVM などの血管奇形を合併している可能性が高い。AVM の中でも直径が 1 cm 以下のものは micro AVM に分類され⁵⁾、AVM 全体の 7% 程度とされている¹⁾。Micro AVM は小さな nidus もしくは fistula を伴い、時に小ささゆえに異常な流入動脈もしくは流出静脈のみしか認めないこともあり、明確な病態把握は困難であるとされている^{1,3)}。それゆえ pial arteriovenous fistula(AVF)など他のシャント疾患との明確な鑑別は困難であり、小さな pial AVF が micro AVM と報告されている可能性もあると考えられる。また、micro AVM は、小さいながら大きな出血を起こすことが多いと言われており³⁾、出血の頻度も通常の AVM よりも高く、出血発症 AVM の 21% を占めるとされている¹⁾。

Micro AVM は CT や MRI では診断が困難と言われて

Fig. 2 3D-DSA では AICA の末梢に 1 mm 程度の瘤状構造物を認めた(A : 正面, B : LAO 40 度, 黄色の線はマイクロカテーテルの挿入ルートであり, ルートが見えやすい角度が LAO 40 度であった).

Fig. 3 椎骨動脈撮影では distal AICA から静脈の早期描出および瘤状構造物を認めた(A 白矢頭：瘤状構造物). 瘤状構造物は毛細血管相で明瞭に描出された. (B 白矢頭：瘤状構造物). 血管内治療で, AICA にマイクロカテーテルを挿入して撮影すると, medullary vein が動脈相で描出され, tentorial sinus へ流出していた. feeder が AICA, drainer が medullary vein であり, 同部位に静脈瘤を伴う micro AVM と診断した(C 白矢印：feeder, 白矢頭：静脈瘤, 二重白矢印：drainer). 3D-DSA で関係を明瞭にすると, 黄色が feeder, 青色が drainer, 水色は静脈瘤であった(D : Fig. 2 の 3D 画像と角度を合わせており LAO 40 度).

おり¹⁾, 血腫除去術の際に術中所見で診断されることもある⁶⁾. 本症例でも, 小脳出血で血管奇形を疑ったものの, CT や MRI でははっきりした異常は認めなかった. 急性期には診断がつかないため, 時期をおいて再検査をすることが望ましいとされており, その場合, 血管造影検査が最も感度が良いとされている^{1,6)}.

しかしながら, 本疾患では時期をおいた血管造影検査でも病態が把握できないことがある^{7,8)}. Micro AVM は小ささゆえに主幹動脈の血管造影検査をしても詳細な病態がわからないことがある. より正確な診断をつけるためには超選択的カテーテル撮影が有用であり⁷⁾, 本症例では, 術中の超選択的カテーテル撮影で初めて feeder および drainer を同定でき, 病態の詳細が評価できた. 術前の椎骨動脈撮影で, 瘤状構造物は distal AICA から連続しており, 最初は distal AICA 動脈瘤と診断したが, マイクロカテーテル撮影では medullary vein が動脈相で

描出され tentorial sinus へ流出しており, 静脈瘤を伴う micro AVM と診断した. Micro AVM では, 小ささゆえに nidus がはっきりせず, fistula のみ描出されることがあり⁹⁾, 本症例では fistula のみの描出であったが, 場所が脳内であることなどを考慮すると, micro AVM の診断になると考えた. 同疾患ではマイクロカテーテル撮影による病態把握が重要であると考え.

治療についてであるが, 表在性のもは外科的治療を行い^{1,5,10,11)}, 深部に存在するものに対してはγナイフなどの定位放射線治療が検討される. しかしながら, γナイフでは nidus の大きさが 1.5 cm 以下の AVM に対する治療は根治するまで時間がかかり, 治療割合も 75% 程度とされており, 根治しない場合破裂の危険性が残る¹²⁾. 外科的治療では, 深部のものや eloquent area のものでは神経所見が出現する危険性が高いため, 治療が困難である⁸⁾. 最近では, カテーテルやガイドワイヤーの

Fig. 4 Distal AICA までマイクロカテーテルを挿入し、そこから NBCA 20% を 0.07 ml 注入した(A)。治療後の椎骨動脈撮影では静脈の早期描出は消失しており静脈瘤も認めなくなった(B)。

Fig. 5 術後単純 CT で新規出血は認めず造影剤の漏出のみ認めた。血腫腔外側には NBCA のキャストが確認できた(A：血腫腔(白矢印)、キャスト(二重白矢印)、B：静脈瘤レベル(白矢印)、キャスト(二重白矢印))。NBCA は小脳の実質内に描出されていた(B 白矢印)。頭部 MRI で新規梗塞は認めなかった(C)。

性能向上によって超選択的にカテーテル挿入が可能になってきており、外科的介入が困難な症例では、経動脈的塞栓術によって nidus の閉塞を目的とする場合も増えてきている。Perrini ら⁸⁾は、micro AVM に対する外科的治療および血管内治療の症例について検討している。同報告では、どちらも有効な治療法であるが、外科的治療は直接シャントを確認できるため、表面にあるものやアプローチしやすいものでは望ましいとしており、eloquent area の場合や深部で sinus が絡んでいる場合は血管内治療で選択的に塞栓物質で塞栓することが望ましいと提言している。Andreou ら¹⁾は、26 例の micro AVM に対して血管内治療を施行した報告をしており、全例治療による合併症は認めず、初回治療で 85% が完全閉塞を得ることができ、血管内治療が micro AVM に対して有用であると述べている。過去の報告で、塞栓物質はほとんどが NBCA であり、最近では Onyx を使用した症例も報告されている¹⁾。本症例では、distal AICA が栄養血管であり、micro AVM の位置は主幹動脈から離れていたため、外科的なアプローチは orientation が困難であると考えられ、NBCA による栄養動脈および nidus の塞栓を行うことで良好な転帰を辿った。

結 語

今回、術中の超選択的カテーテル撮影にて micro AVM であることが判明した小脳出血の若年例を経験した。動脈瘤と AVM では手術戦略が異なり、脳出血若年例の治療の際には、超選択的カテーテル撮影でのみ診断できる micro AVM の潜在に留意すべきである。

著者は日本脳卒中学会への COI 自己申告を完了しており、本論文の発表に関して、開示すべき COI はない。

参考文献

- 1) Andreou A, Ioannidis I, Lalloo S, et al: Endovascular treatment of intracranial microarteriovenous malformations. *J Neurosurg* 109: 1091–1097, 2008
- 2) 大宅宗一, 吉田信介, 藤澤直顕ら：小児の脳動静脈奇形の特徴を踏まえた治療—いかに出血源を特定し、閉塞を確認し、そして経過観察するか—。脳卒中の外 45: 251–259, 2017
- 3) Hong JF, Song YF, Liu HB, et al: The clinical characteristics and treatment of cerebral microarteriovenous malformation presenting with intracerebral hemorrhage: A series of 13 cases. *Biomed Res Int* 2015: 257153, 2015
- 4) 近藤 礼, 佐藤慎治, 伊藤美以子ら：瘤内塞栓術を施行

- した distal AICA 破裂動脈瘤の一例：症例報告. JNET 4:146–150, 2010
- 5) Yasargil MG: Microneurosurgery IIIA AVM of the brain, history, embryology, pathological considerations, hemodynamics, diagnostic studies, microsurgical anatomy. Stuttgart, Thieme, 1987, p 85
 - 6) Hino A, Fujimoto M, Yamaki T, et al: Value of repeat angiography in patients with spontaneous subcortical hemorrhage. Stroke 29: 2517–2521, 1998
 - 7) Willinsky R, TerBrugge K, Montanera W, et al: Micro-arteriovenous malformations of the brain: superselective angiography in diagnosis and treatment. AJNR Am J Neuroradiol 13: 325–330, 1992
 - 8) Perrini P, Scollato A, Cellerini M, et al: Results of surgical and endovascular treatment of intracranial micro-arteriovenous malformations with emphasis on superselective angiography. Acta Neurochir (Wien) 146: 755–766, 2004
 - 9) Alén JF, Lagares A, Paredes I, et al: Cerebral microarteriovenous malformations: a series of 28 cases. J Neurosurg 119: 594–602, 2013
 - 10) Stiver SI, Ogilvy CS: Micro-arteriovenous malformations: significant hemorrhage from small arteriovenous shunts. Neurosurgery 46: 811–818; discussion 818–819, 2000
 - 11) Willinsky R, Lasjaunias P, Comoy J, et al: Cerebral micro arteriovenous malformations (mAVMs). Review of 13 cases. Acta Neurochir (Wien) 91: 37–41, 1988
 - 12) Nataf F, Merienne L, Schlienger M, et al: [Cerebral arteriovenous malformations treated by radiosurgery: a series of 705 cases]. Neurochirurgie 47: 268–282, 2001 (in French)

Abstract

A case of ruptured micro AVM diagnosed by superselective angiography

Kenji Miki, M.D.,¹⁾ Naoki Noguchi, M.D.,¹⁾ Megumu Mori, M.D., Ph.D.,¹⁾ Tetsuhisa Yamada, M.D., Ph.D.,¹⁾
Koichi Arimura, M.D., Ph.D.,²⁾ Yasutoshi Kai, M.D., Ph.D.,¹⁾ and Yoshihiro Natori, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Aso Iizuka Hospital

²⁾Department of Neurosurgery, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University

We report a case of micro arteriovenous malformation (AVM) that was difficult to make diagnosis in acute phase of hemorrhage. A 19-year-old woman presented headache. Brain CT showed cerebellum hemorrhage. Contrast CT and MRI showed no source of hemorrhage. Few days later, the angiography showed a small aneurysm of distal anterior-inferior cerebellar artery. During endovascular treatment, the superselective angiography showed micro AVM, and embolization of parent artery with *n*-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) was effective. It is difficult to detect micro AVM in acute phase of subarachnoid hemorrhage, and repeat angiography is important. Especially, superselective angiography enables us to understand structure of micro AVM, and the treatment using NBCA is effective.

Key words: micro arteriovenous malformation, cerebellar hemorrhage, NBCA

(Jpn J Stroke 42: 248–252, 2020)