外傷性硬膜動静脈奇形の1例

葉山 典泰・杉浦 和朗・馬場 元毅・鎌塚栄一郎・立沢 孝幸

Traumatic Dural Arteriovenous Malformation

Case Report

Norihiro HAYAMA, Kazuaki SUGIURA, Motoki BABA, Eiichiro KAMATSUKA
and Takayuki TACHIZAWA

Department of Neurosurgery, Tokyo Rosai Hospital, Tokyo

Abstract

Traumatic dural arteriovenous malformation (AVM) is a rare cerebral vascular disease. Traumatic dural AVM fed by cortical artery has rarely been reported so far in the literature. A 57-year-old male developed bruit, thrill and tenderness over the injured region about a year after he had been hit on the occipital region of the head. A linear skull fracture was found to cross over the transverse sinus and a dural AVM in the region of the transverse sinus was detected angiographically. It was considered that this dural AVM was traumatic. Postoperatively, the cortical arteries became feeders of the AVM, so that pure dural AVM changed to mixed pial-dural AVM. The mechanism by which a cortical artery became a feeder of AVM might be that the "rete mirabile" artery started as a channel to the nidus in reverse direction.

Key words: head trauma, dura mater, arteriovenous malformation, cortical artery, transverse sinus

I はじめに

硬膜動静脈奇形(dural AVM)は頭蓋内動静脈奇形の10~15%を占め^{1,10,11)},うち63%が横静脈洞およびS状静脈洞領域に発生する²¹⁾。外傷を原因とするものは特異性に比べ頻度は少なく、全dural AVMの約10分の1とされている¹³⁾。今回我々の報告する症例では、線状骨折が原因で横静脈洞領域に生じた硬膜動静脈奇形が、不完全な治療を繰り返す間に脳動脈皮質枝をfeederとして取り込むという事実が観察された。文献上では硬膜動静脈奇形で脳動脈皮質枝をfeederとしてもつ例はまれであり²⁾,そのfeeder発生のメカニズムに若干の考察を加え報告する。

II 症 例

＜患者＞ 57才、男性

主訴：右後頭部痛および右後頭部動脈性拍動

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：1957年、ストレプトマイシンによる肺結核症治療後、両側性難聴が生じた。

現病歴：1981年12月11日、転倒して右後頭部を強打した。頭蓋単純写にて右後頭部に縦走する線状骨折を認め、その後の術中所見でもこの骨折が横静脈洞を横断していることが確認された。CT scanでは左前頭葉にcontre-coup injuryによると思われる脳挫創および脳内出血が認められたが、保存的に治療し4週間後に特別の後遺症もなく独歩退院した。しかし、1982年2月頃より右後頭部に圧迫痛が

東京労災病院脳神経外科

Address reprint requests to: N. Hayama, M.D., Department of Surgery, Second Hospital of Nippon Medical School, 1-396 Kosugi-cho, Nakahara-ku, Kawasaki, Kanagawa 211.

受稿 1985年2月20日 受理 1986年1月28日

Fig 1 A Right external carotid angiogram shows that the dural arteriovenous malformation (AVM) is fed by the right occipital artery and drains to the right transverse sinus. B Right lateral tentorial artery (arrowheads) feeds the dural AVM

出現し、1983年4月血管性雑音および右後頭部の動脈性拍動を主訴として再入院した。

第1回脳血管造影および手術所見：右後頭部に血管性雑音および動脈性拍動が認められたため、右頸動脈写を施行した。右外頸動脈写にて、右後頭動脈から頭蓋骨を貫通して右横静脈洞に導出する多数の分枝がみられ、横静脈洞の早期造影が認められた(Fig. 1A)。また右内頸動脈写では、right lateral tentorial artery もこの病巣に関与していることが認められた(Fig. 1B)。これらの所見より dural AVM と診断し、1983年6月21日、Fig. 2 left のごとく硬膜を切開して、右後頭動脈から右横静脈洞に入る小動脈枝をおのの凝固切断し、さらに right lateral tentorial artery と思われるものを凝固切断した。術後経過は良好で血管性雑音および動脈性拍動は消失し、神経学的にも異常所見はなく、1983年7月3日軽快退院となった。以後、外来にて経過観察していたところ、7月中旬より左後頭部に動脈性拍動、血管性雑音が再度出現した。

第2回脳血管造影および手術所見：再入院後に行った脳血管写にて、両側後頭部の dural AVM が描出された。左側では左後頭動脈が feeder となり、左側静脈洞交会直上で nidus を構成したのちに左横静脈洞に導出していた(Fig.

Fig 2 left In the first operation the right transverse sinus was isolated from the dura, by incision of the dura (dash and dot line) along the sinus right The dura involved by dural AVMs was resected and the involved venous sinuses were isolated at the second operation Newly formed dural AVM (a), and residual dural AVM (b) SSS indicates superior sagittal sinus, TS, transverse sinus.

3A)。前回の手術で凝固切断したと思っていた right lateral tentorial artery は依然として描出され、前回の手術で凝固切断した右後頭動脈の切断端からも feeder が再形成されていることが観察された(Fig. 3B)。第2回手術時には、前回手術で切開した後頭蓋窩の硬膜はほぼ完全に癒合し、この部分を通して後頭動脈の分枝が nidus に流入している

Fig. 3 A Left external carotid angiogram shows that the left occipital artery feeds contralateral new dural AVM draining into the left transverse sinus B. Postoperative right carotid angiogram on August 19th showing the nidus is still fed by right lateral tentorial artery as well as by new feeders from the right occipital artery.

ことも確認された。1983年8月23日、Fig. 2 rightのごとく硬膜を切開したが、術中に確認しえた範囲ではテント上下の脳表から硬膜に向かう異常血管はみられなかった。左側 dural AVM に関しては、左後頭動脈を凝固切断し、nidus を含む硬膜を切除した。右側に関しては、前回の手術で切断しえなかった right lateral tentorial artery と思われる血管および右後頭動脈からの分枝を凝固切断し、さらに nidus を含んでいると思われる肥厚した硬膜を切除した。以後、外来通院を行っていたが、1984年1月頃から再び頭痛をき

たしたため脳血管写を行った。

第3回脳血管写所見：第1回同様、第2回手術でも right lateral tentorial artery の処理は不十分であったことが判明しただけでなく、今回は新たに left lateral tentorial artery、さらには右椎骨動脈写で right posterior temporal artery も feeder として描出された (Fig. 4A,B)。また右内頸動脈写では、右中大脳動脈 temporal branch 末端にコイル状の異常血管新生が認められ、nidus に流入していた (Fig. 4C)。これらの所見、特に軟膜側からの血管新生は、前回の血管写では認められなかったものである。

Ⅲ 考 察

Dural AVM は、頭蓋内 AVM の10~15%^{1,10,11)}を占める比較的にまれな疾患である。このなかでは横静脈洞および S 状静脈洞領域のものが63%と最も多く、ついで海綿静脈洞領域のものが26%を占める²¹⁾。原因は特発性と外傷性に分けられるが、後者は前者の約10分の1程度と少ない¹³⁾。本症例は、受傷約1年後に線状骨折の近傍に発生したことより、外傷性 dural AVM と考えられる。本症例の受傷から発症までの期間は約1年であったが、文献上では30日⁸⁾から1年⁴⁾にわたり、受傷後一定の時間を経たのちに発症している⁷⁾。この期間は、受傷時に生じた小動静脈瘻が拡大するのに要する時間と考えられる。

外傷性 dural AVM の発生原因は、外傷特に骨折によって硬膜上で近接する動脈と静脈が fistula を作る²²⁾ことによるとされている。しかし、Chaudhary ら²¹⁾によれば、この考えは中硬膜動脈の major branch にはあてはまるが、横静脈洞・S 状静脈洞などの major venous sinus 領域の dural AVM にはあてはまらないとしている。また、Houser ら¹⁰⁾、Chaudhary ら²¹⁾は、特発性・外傷性を問わず静脈洞血栓こそが dural AVM の主要原因であり、血栓が器質化する過程で動脈と静脈洞の間に直接の交通ができるという説を提唱している。しかし、高久らの特発性 dural AVM に関する総説²⁴⁾によると、横静脈洞の閉塞または狭窄はわずか7.9%、S 状静脈洞のそれは3.4%である。本症例においては、右横静脈洞は閉塞しており (Fig. 5A)、第1回目脳血管写時に左外頸動脈写を行い、対側に dural AVM がないことを確認すべきであったかもしれない。しかし、対側に血管性雑音および動脈性拍動が認められ、左外頸動脈写で初めて対側の dural AVM が観察された時点では、左横静脈洞の閉塞は認められなかった (Fig. 5B)。以上より、dural AVM の発生メカニズムを静脈洞血栓症のみに求めることは困難と思われる。

外傷性 dural AVM の feeder としては、特発性と同様に、内頸動脈の天幕枝および硬膜枝、外頸動脈の分枝であ

Fig. 4 A: Right carotid angiogram shows that the right lateral tentorial artery is still feeding the nidus. Left carotid angiogram shows that the left tentorial artery has newly become a feeder. B: Right vertebral angiogram shows that the right posterior temporal artery has newly become a feeder. C: There are coiled arteries at the end of right temporal branches of the right middle cerebral artery.

Fig. 5 A: Right transverse sinus was found occluded when the right side dural AVM was detected. B: Although the left side dural AVM existed, there was no occlusion of the left transverse sinus.

る後頭動脈, ascending pharyngeal artery の硬膜枝および中硬膜動脈の posterior branch, そして椎骨動脈の硬膜枝などが挙げられる^{3,24)}。本症例において, 第1回脳血管写で発見された feeder は right lateral tentorial artery および right occipital artery であり, 第2回脳血管写で発見された対側 dural AVM の feeder も left occipital artery であった。Occipital artery および tentorial artery を発生学的見地より考えてみると, occipital artery は発生初期には内頸動脈系に属し, のちに外頸動脈系へと移行するが, 横静脈洞との交通は残るとされている²⁶⁾。Tentorial artery に関しても, 内頸動脈に由来するものであり, tentorial sinus を介し横静脈洞と交通することが明らかにされている^{12,26)}。これらはいずれも胎児期には活発に作動していた血管である^{12,26)}。本症例の特殊性は, 2度の不十分な手術後に, 中大脳動脈および椎骨動脈系の脳動脈皮質枝が feeder として取り込まれた点にある。高久らの総説²⁴⁾によると, 中大脳動脈および後中大脳動脈などの脳内動脈からも dural AVM に対して交通をもつ場合があるとされているが, これらの例においてはいずれも外傷との明確な因果関係はなく²⁵⁾。過去の文献を調べた限りでは, 外傷性 dural AVM で本症例のごとく再三の処理不完全のため脳内動脈を feeder としてもつようになった例は, Feldman ら⁷⁾の上矢状静脈洞領域の1例のみであり, 横静脈洞領域の外傷性 dural AVM のものに関してはきわめてまれであると考えられる。いずれにしても, 我々の経験した事実は, 処理不十分なままに dural AVM を放置すれば, Newton ら¹⁹⁾が AVM の導入動脈の違いによって分類定義した pure dural AVM が mixed pial-dural AVM に変化する可能性があることを示唆している。本症例でみられた脳動脈皮質枝からの feeder は, “rete mirabile” artery (transdural anastomosis: 硬膜動脈からクモ膜を介して脳表の血管とつながってい

る)²⁷⁾に由来するものと考えられている⁷⁾。不完全な処理のために拡大した nidus の入口部圧が周辺血管の圧に比べて低くなれば²⁰⁾, “rete mirabile” artery が逆方向に再開通することがありえよう。この “rete mirabile” artery は, tentorial artery や occipital artery と同様, 胎児期には正常に作動していた血管網である。これらの共通点を勘案すれば, 外傷性 dural AVM の発生メカニズムとして, 外傷によって硬膜上の動脈と静脈との間にまず fistula が生じ, 水力学的圧勾配の変化によって nidus が大きくなるに従い, 胎児性血管網を feeder として次々に取り込みつつ増大する可能性が示唆される。しかし, 骨折によって動静脈瘻が生じて, すべての例でこのような feeder の取り込みが起こるわけではなく⁹⁾, 胎児性血管網が完全に退縮している場合には, このような feeder の取り込みが起こることは考え難く, なんらかの形で潜在的に活動しているものに限られると考えられる。

Dural AVM の治療方針¹⁶⁾としては, ①外頸動脈や後頭動脈の結紮⁶⁾, ②流入動脈の人工栓塞術^{9,17)}, ③feeder を nidus により近い部分で遮断する方法^{11,15)}, ④横静脈洞を含めて dural AVM を全摘出する方法^{14,23)}などが推奨されている。本症例では, 第1回手術で硬膜を切離し多数の feeder を横静脈洞近傍で十分に電気凝固後切断したにもかかわらず, 第2回手術時には硬膜切離端は再癒合し, occipital artery の切断端からも癒合部分を乗り越えて feeder の再形成が認められた。また, 第2回手術では dural AVM の nidus を肉眼的に確認し切除したつもりであったが, 結果的には nidus は残っており, 反対側の lateral tentorial artery や脳動脈皮質枝をも feeder として活動させてしまう素地を作ったことが反省される。このことは, 肉眼的に AVM を見つけることの困難さと, 脳血管写上には描出されない nidus¹⁸⁾が存在する可能性を示唆するものである。本症例から判明したように, 横静脈洞領域の dural AVM に対しては, 横静脈洞に沿って硬膜を切離する方法や横静脈洞を温存して nidus を切除する方法のみでは不十分な場合がある。硬膜切断端をシリコンで包埋する, あるいは fistula とともに横静脈洞をも切除する^{14,23)}など, より radical な方法を考慮すべきものとする。

IV ま と め

外傷約1年後に bruit, thrill および頭痛を主訴として来院し, 硬膜動静脈奇形が発見された1例を報告した。手術中に nidus 部で横静脈洞を横断する骨折線が観察されたことより, 外傷性と考えられた。横静脈洞に沿って硬膜を開閉し feeder を凝固切断したが, 一部 feeder の不完全処理のため nidus はむしろ拡大し, 最終的には脳動脈皮質枝を

feeder として取り込んだことが観察された。外傷に続発した横静脈洞・S 状静脈洞領域の硬膜動静脈奇形の症例において、このように feeder が増加してきた事実を証明しえた報告はきわめてまれと考えられる。

文 献

- 1) Bitoh S, Nakagawa H, Arita N, Fujiwara M: Dural arteriovenous malformation in the anterior fossa. Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 21: 131-134, 1981
- 2) Chaudhary MY, Sachder VP, Cho SH, Weitzer I Jr, Duljic S, Huang YP: Dural arteriovenous malformation of the major venous sinuses: An acquired lesion. *AJNR* 3: 13-19, 1982
- 3) Debrun G, Chartres A: Infra and supratentorial arteriovenous malformations. A general review. About 2 cases of spontaneous supratentorial arteriovenous malformation of the dura. *Neuroradiology* 3: 184-192, 1972
- 4) Dennery JM, Ignacio BS: Post-traumatic arteriovenous fistula between the external carotid arteries and superior longitudinal sinus: Report of a case. *Canad J Surg* 10: 333-336, 1967
- 5) Djindjian R, Cophignon J, Rey TJ, Merland JJ, Hondart R: Superselective arteriographic embolization by the femoral route in neuroradiology. Study of 50 cases. III. Embolization in cranio-cerebral pathology. *Neuroradiology* 6: 143-152, 1973
- 6) Fadhli HA: Congenital arteriovenous fistula involving the occipital artery and lateral venous sinus: Case report. *J Neurosurg* 30: 299-300, 1969
- 7) Feldman RA, Hieshima G, Giannotta SL, Gade GF: Traumatic dural arteriovenous fistula supplied by scalp, meningeal, and cortical arteries: Case report. *Neurosurgery* 6: 670-674, 1980
- 8) Fincher EF: Arteriovenous fistula between the middle meningeal artery and the greater petrosal sinus: Case report. *Ann Surg* 133: 886-888, 1951
- 9) Frecman N, Sartor K, Herrman HD: Traumatic arteriovenous fistulae of middle meningeal artery and neighbouring veins or dural sinuses. *Acta Neurochir (Wien)* 55: 273-281, 1981
- 10) Houser OW, Baker HL, Rhoton AL, Okazaki H: Intracranial dural arteriovenous malformations. *Radiology* 105: 55-64, 1972
- 11) Hugosson R, Bergström K: Surgical treatment of dural arteriovenous malformation in the region of the sigmoid sinus. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 37: 97-101, 1974
- 12) Kempe L: Venous aneurysms and dural venous malformation, in Kapp JP, Schmidek HH (eds): *The Cerebral Venous System and its Disorders, chapter 14*. New York, Grune & Stratton, 1984, pp 475-503
- 13) 児玉安紀, 石川 進, 日比野弘道, 桑原倖利, 梶川 博: 硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula) — 自験例と 62 症例の検討 —. *脳神経外科* 2: 259-264, 1974
- 14) Kosnik EJ, Hunt WE, Miller CA: Dural arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 40: 322-329, 1974
- 15) Kunc Z, Bret J: Congenital arterio-sinusal fistulae. *Acta Neurochir (Wien)* 20: 85-103, 1969
- 16) 馬渕正二, 中川 翼, 阿部 弘, 木野木均, 都留美都雄: 後頭蓋窩硬膜動静脈奇形の 3 症例 — 特に外科的治療について —. *脳神経外科* 11: 883-889, 1983
- 17) Manaka S, Izawa M, Nawata H: Dural arteriovenous malformation treated by artificial embolization with liquid silicone. *Surg Neurol* 7: 63-65, 1977
- 18) McCormick WF, Nofzinger JD: "Cryptic" vascular malformations of the central nervous system. *J Neurosurg* 24: 865-875, 1966
- 19) Newton TH, Cronqvist S: Involvement of dural arteries in intracranial arteriovenous malformations. *Radiology* 93: 1071-1078, 1969
- 20) Nornes H, Grip A: Hemodynamic aspects of cerebral arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 53: 456-464, 1980
- 21) 太田富雄, 梶川 博: 硬膜動静脈奇形. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 18: 439-472, 1978
- 22) Rumbaugh CL, Bergeron RT, Kurze T: Intracranial vascular damage associated with skull fractures: Radiographic aspects. *Radiology* 104: 81-87, 1972
- 23) 清水恵司, 奥 謙, 呉 淳東, 早川 徹, 生塩之敬: 硬膜動静脈奇形. *脳神経外科* 7: 257-263, 1979
- 24) 高久 晃, 西嶋美知春: 後頭蓋窩硬膜動静脈奇形の手術. *脳神経外科* 10: 1041-1046, 1982
- 25) 高久 晃, 佐藤智彦, 坂本哲也, 鈴木二郎: Dural arteriovenous malformation of the posterior fossa — 特にその本態および治療について —. *脳神経外科* 4: 489-501, 1976
- 26) Vidyasagar C: Persistent embryonic veins in the arteriovenous malformations of the dura. *Acta Neurochir (Wien)* 48: 199-216, 1979
- 27) Weidner W, Hanafee W, Markham CH: Intracranial collateral circulation via leptomeningeal and rete mirabile anastomoses. *Neurology (Minneapolis)* 15: 39-48, 1965

[別刷請求先: 〒211 神奈川県川崎市中原区小杉町1-396, 日本医科大学第2病院外科, 葉山典泰]