多発性脳内血腫にて発症した後頭蓋窩硬膜動静脈奇形の1例

山下 陽一・志村 俊郎・岡田 卓郎・村山 享一・中沢 省三*

Dural Arteriovenous Malformation in the Posterior Fossa presenting with Multiple Intracerebral Hematomas

Case Report

Yoichi YAMASHITA, Toshiro SHIMURA, Takuro OKADA, Kyoichi MURAYAMA and Shozo NAKAZAWA*

*Department of Neurosurgery, Nippon Medical School Tama Nagayama Hospital, Tama, Tokyo; *Department of Neurosurgery, Nippon Medical School, Tokyo*

Abstract

A 59-year-old female was hospitalized because of disturbance of consciousness and convulsive seizures. She had taken a hormonal drug for 15 months after breast cancer surgery. A computed tomography scan revealed multiple high-density areas in the left temporal and frontal and the right parietal lobes. Angiography showed a dural arteriovenous malformation (AVM) in the posterior fossa fed by the occipital and the middle meningeal arteries and draining into the transverse sinus. It also demonstrated occlusion of the left sigmoid sinus in the venous phase. She complained of headache in the occipital region and dizziness. On day 13, the left occipital artery was ligated and cut, and then abnormal arterial anastomoses around the lesion were coagulated. After surgery, clinical symptoms disappeared. The etiology of dural AVM is controversial, but in this case it is suspected that sinus thrombosis due to the drug caused the dural AVM. The authors discuss the etiology and treatment of dural AVM in the posterior fossa.

Key words: dural arteriovenous malformation, multiple intracerebral hematomas, treatment

I はじめに

後頭蓋窩硬膜動静脈奇形は以前は比較的まれな疾患と考えられていたが、近年、脳血管撮影の一般化に伴い、本症の報告が散見されるようになった^{3,5,6,10,15,19)}。今回我々は、痙攣発作で発症し、CTにて多発性脳内血腫の認められた後頭蓋窩硬膜動静脈奇形を経験した。このように多発性脳内血腫で発症した症例は我々が渉猟しえた限りでは初めてと思われ、硬膜動静脈奇形の発生機序を考える上できわめて興味深いと思われるので、若干の文献的考察を加え、報

告する。

II 症 例

<患者> 59才、女性

主訴：意識障害、痙攣発作

家族歴：特記事項なし

既往歴：1988年3月、乳癌にて乳房摘出術を施行され、その後ホルモン製剤(酢酸メドロキシプロゲステロン600 mg/3×/日)を服用していた。1988年7月、痙攣発作にて近医に入院、CT上、左後頭葉に小出血を指摘される

日本医科大学多摩永山病院脳神経外科 *日本医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: Y. Yamashita, M.D., Department of Neurosurgery, Nippon Medical School, 1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo 113.

受稿 1989年12月25日 受理 1990年7月24日

Fig. 1 Plain computed tomography (CT) scan, showing a high-density area in the left occipital lobe.

(Fig. 1)も保存的加療にて独歩退院した。外傷の既往はない。

現病歴：1989年5月9日、自宅玄関の前で倒れ、痙攣発作を起こしているところを発見され、救急車にて当院へ搬送された。

入院時所見：意識レベルはJCSにて300、血圧108/60 mmHg、呼吸浅く、瞳孔両側3 mm、右方共同偏視が認められた。眼底所見、血液凝固系に異常は認められず、耳介後部での bruit も聴取されなかった。

神経放射線学的所見：CT scanにて左前頭葉、左側頭葉および右頭頂葉の3ヵ所に2×2×2 cmほどの小血腫が認められた。mass effectはなかった(Fig. 2)。6-vessel studyを施行したところ、左総頸動脈撮影では動脈相にてすでに横・直静脈洞が造影され、拡大した後頭動脈を feeder として横静脈洞へ注ぐ硬膜動静脈奇形が認められた(Fig. 3

Fig. 2 Plain CT scan on admission, showing high-density areas in the left frontal and temporal and the right parietal lobes.

left)、左外頸動脈撮影では中硬膜動脈後枝も feeder となり(Fig. 3 right)、右頸動脈・椎骨動脈撮影では feeder は認められなかった。なお、静脈相において左S状静脈洞以下は造影されなかった。

入院後経過：入院翌日より意識はほぼ清明となり、後頭部痛と眩暈を訴えるだけとなった。また、左下肢に静脈血

Fig. 3 left: Left common carotid angiograms, showing a dural arteriovenous malformation (AVM) supplied from the left occipital artery (arrows) and draining into the left transverse sinus. right: Left external carotid angiogram, showing the dural AVM supplied from the left occipital artery and the posterior branch of the middle meningeal artery (arrow).

Fig. 4 Enhanced CT scan on day 12, showing irregular enhancement in the occipital lobe. The high-density areas have disappeared.

Fig. 5 Postoperative left carotid angiogram, showing the partially disappeared but still remained dural AVM.

栓症が認められ、全体的に腫脹していた。5月21日のCT scan では血腫は消失し、後頭葉と左側頭葉に点状から線状に増強される領域が認められた(Fig. 4)。5月22日、main feederとなる後頭動脈を頭蓋内へ流入する部位近くで結紮切除し、周囲の異常血管を焼灼した。術後の脳血管撮影では後頭動脈の分枝と中硬膜動脈後枝がfeederとなり、横・直静脈洞が術前よりも薄く造影されていた(Fig. 5)。しかし、後頭部痛、眩暈は消失し、神経学的にも異常が認められないため、退院した。現在、外来で経過観察中であるが、症状の再発はみられていない。

III 考 察

後頭蓋窩硬膜動静脈奇形に関する報告は近年増加傾向にあり、Newton ら¹³⁾の報告によると、天幕下動静脈奇形の35%が硬膜動静脈奇形であり、天幕上動静脈奇形のうち硬膜動静脈奇形の占める割合が5%であるのと比べ、頻度が高い。性差はほとんど認められず、40才以降に好発する^{5,12)}と言われる。

流入動脈として外頸動脈の後頭動脈が70~90%ともっとも多く¹⁴⁾、中硬膜動脈、内頸動脈天幕枝、さらに椎骨動脈硬膜枝、甲狀頸動脈の分枝など、後頭蓋窩の硬膜枝、天幕枝のすべてが含まれる^{12,14,20)}。それ故、脳血管撮影では6-vessel studyや鎖骨下動脈撮影が必要となってくる。流出静脈としては横・S状静脈洞が70~90%と大部分を占める¹⁴⁾。

後頭蓋窩硬膜動静脈奇形による症状は、拍動性耳鳴がもっとも多く、他覚的にはbruitが耳介後部で聴取できることが多い^{4,5,8,14,16,20)}。bruitは頸動脈や後頭動脈の圧迫により消失するのが特徴的である。そのほか、硬膜動静脈奇形の二次的変化による症状として、頭蓋内圧亢進による頭痛、うっ血乳頭、また巣症状^{4,8,14,16,20)}、まれにクモ膜下出血⁴⁾や脳内血腫¹²⁾で発症する症例もあり、陳ら²⁾は妊娠、出産を契機に出血を繰り返した例を報告しているが、多発性脳内血腫で発症した例は今回が初めての報告と思われる。

発生機序に関しては、先天説、後天説とがあり、いまだ結論を得ないが、Houser ら⁶⁾によると、横静脈洞部硬膜動静脈奇形の経時的脳血管撮影所見より硬膜動静脈奇形は静脈洞血栓症後の血管新生による後天性異常であるという。また、Chaudhary ら¹⁾は外傷後に生じた横・S状静脈洞部の硬膜動静脈奇形の症例を報告し、外傷による静脈炎や静脈血栓の器質化、再開通の過程で生理的動静脈短絡の病的開通が生じたとする後天説を唱えている。これに対し、寺尾ら²¹⁾は先天的に小さい動静脈回路が存在し、それが頭蓋内圧の変動による血流増加で大きく成長するという可能性を指摘し、また間中ら¹¹⁾も高血圧、動脈硬化、糖尿病、出産、外傷といった頭蓋内圧が上昇するような状態により元来存在する硬膜血管網の異常発達した結果ではないかと推論し、先天説を支持している。

今回我々が経験した症例は、最近血栓症の発生報告が散見されている酢酸メドロキシプロゲステロンという黄体ホルモン製剤を服用しており、一年ほど前にも痙攣発作の既往があって、CT scan上硬膜動静脈奇形からと思われる出血を指摘されている。そして、今回の脳血管撮影での静脈洞閉塞の所見を考え合せると、静脈洞血栓症によると思わ

れる静脈洞閉塞が生じた結果、急激な循環障害による静脈圧上昇が生じ、それにより末梢血管の破綻による左右大脳半球の多発性出血や痙攣発作が引き起こされたものと考えられる。前回の発作時に血栓症が生じ、Houserら⁶⁾の言う血栓が器質化する間に動脈-静脈洞間に交通ができ、それが発達したものか、あるいは横静脈洞部に多く存在すると言われる生理的動静脈短絡の異常発育によるものか、確かなことは不明である。しかし、今回のように薬剤によると思われる血栓症という後天的素因も硬膜動静脈奇形の発生に大きく関与しているものと思われる。

後頭蓋窩硬膜動静脈奇形の治療に関しては現在までいろいろ報告されてきてはいるが、決定的な治療法がないのが現状である。自然消失例も報告されており、Fremendら³⁾は43例の後頭蓋窩硬膜動静脈奇形を検討し、7例の未治療患者のうち6例に症状の変化がなく、1例に血管撮影では確認されていないが、症状の消失を認めている。また、貫井ら¹⁴⁾は5例の後頭蓋窩硬膜動静脈奇形のうち、3例の未治療患者はすべて症状の変化を認めなかったと報告している。このように硬膜動静脈奇形は本来良性であるが、出血、耳鳴、頭痛、視力低下などが臨床上問題となるような場合は外科的治療の適応があると思われる。治療の根本は動静脈奇形の全摘と頭蓋内外の短絡路を一次的にできるだけ切断することであるが、手技的に困難な場合が多い。選択的にcatheterizationを行い、種々の塞栓物によるembolizationで良好な結果を得たとの報告もある^{7,17,18)}。

我々の症例では、後頭動脈を頭蓋内流入部付近で結紮切断し、周囲の異常血管をできるだけ焼灼したが、術後、切断部より中枢側の後頭動脈分枝と中硬膜動脈後枝よりのfeederにより静脈洞が薄く造影されていた。Kosnikら⁹⁾は外頸動脈の結紮では症状の一次的軽快は望めるが、すぐに再発すると述べ、高久ら²⁰⁾は外頸動脈、甲狀頸動脈幹からのfeederを結紮しただけでは不十分であり、術後内頸動脈天幕枝などがfeederとして発達してくると報告している。しかし、今回の我々の症例では臨床的には症状の消失がみられ、また貫井ら¹⁴⁾も外頸動脈結紮の2症例で術後の血管撮影上、動脈相早期より静脈洞の描出を認め、症状の再発も認められたが、長時間経過をfollowしているうちに再び症状の消失をみたと報告している。そして、臨床症状が進行性でなく、耳鳴以外の神経症状を認めない場合や一般状態が悪いとき、高齢者などには本法を試みてよいのではないかと述べている。我々も長期followの上、症状の再発、進行によってはembolizationなど侵襲の少ない治療法を選択することを考えている。

IV ま と め

多発性脳内血腫で発症した後頭蓋窩硬膜動静脈奇形の1例を報告した。本症例では薬剤(ホルモン製剤)による静脈洞血栓症が誘因となり、硬膜動静脈奇形が発生したと考えられ、後天的素因がその病因に大きく関与しているものと思われた。また、治療としてmain feederの頭蓋外結紮のみの施行であるため、今後十分なfollowを行う予定である。

初回CTを貸して頂きました東京医科大学八王子医療センターに感謝致します。

本稿の要旨は、第36回日本脳神経外科学会関東地方会(1989年11月、東京)において発表した。

文 献

- 1) Chaudhary YM, Sachdev PV: Dural arteriovenous malformation of the major venous sinuses: An acquired lesion. *AJNR* 3: 13-19, 1982
- 2) 陳 茂楠, 中沢省三, 池田幸穂, 田崎寿人, 志村俊郎, 矢嶋浩三: 妊娠後期に頭蓋内出血を来した硬膜動静脈奇形の1例. *脳神外科* 10: 549-555, 1982
- 3) Fremend M, Reizine D: Longterm follow-up of 43 pure dural arteriovenous fistulae (AVF) of the lateral sinus. *Neuroradiology* 29: 348-353, 1987
- 4) 藤津和彦, 小田正治, 桑原武夫: クモ膜下出血で発症した硬膜動静脈奇形の1例. *脳神外科* 2: 75-79, 1974
- 5) Houser OW, Baker HL Jr, Rhoton AL Jr, Okazaki H: Intracranial dural arteriovenous malformations. *Radiology* 105: 55-64, 1972
- 6) Houser OW, Campbell JK: Arteriovenous malformation affecting the transverse dural venous sinus; an acquired lesion. *Mayo Clin Proc* 54: 651-661, 1979
- 7) 井沢正博, 間中信也, 名和田宏: 後頭蓋窩硬膜動静脈奇形—ファイコン栓塞術を用いた治験例—。 *脳神外科* 5: 157-162, 1977
- 8) 児玉安紀, 石川 進, 日比野弘道, 桑原倅利, 梶川 博: 硬膜動静脈瘻(dural arteriovenous fistula) —自験例と62症例の検討—。 *脳神外科* 2: 259-264, 1974
- 9) Kosnik EJ, Hunt WE, Miller CA: Dural arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 40: 322-329, 1974
- 10) Kühner A, Krastel A: Arteriovenous malformations of the transverse dural sinus. *J Neurosurg* 45: 12-19, 1976
- 11) 間中信也, 福島孝徳, 堀 智勝, 土田富穂, 中村紀夫, 林昭義: 両側性・特発性外頸動脈・海綿維体静脈洞瘻の1例. *脳と神* 23: 71-77, 1971
- 12) 宮城航一, 岩佐英明, 吉水信裕, 増沢紀男, 石島武一, 佐藤文明: 天幕内硬膜動静脈奇形 —1治験例と文献的考察—。 *脳神外科* 4: 1185-1191, 1976

- 13) Newton TH, Troost T: Arteriovenous malformations and fistulas, in: *Radiology of the Skull and Brain. Angiography, vol 2, book 4*. St. Louis, Mosby, 1974, pp 2490-2565
 - 14) 賀井英明, 長屋孝雄, 田中壮佑, 川上雅正, 西松輝高: 後頭蓋窩硬膜動静脈奇形の病態生理と治療. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 17 [Part II]: 425-433, 1977
 - 15) Obrador S, Soto M, Silvela J: Clinical syndromes of arteriovenous malformations of the transverse sigmoid sinus. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 38: 436-451, 1975
 - 16) 太田富雄, 梶川 博: 硬膜動静脈奇形. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 18 [Part II]: 439-472, 1978
 - 17) Sano H, Jain VK: The treatment of dural AVM by embolization with Aron Alpha (ethyl-2-cyanoacrylate). *Acta Neurochir (Wien)* 88: 10-19, 1987
 - 18) 佐野公俊, 神野哲夫, 片田和広, 永田淳二, 石山憲雄: 硬膜動静脈奇形の治療について —アロンアルファによる人工栓塞術—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 20: 845-851, 1980
 - 19) Sundt TM Jr, Piepgras DG: The surgical approach to arteriovenous malformations of the lateral and sigmoid dural sinuses. *J Neurosurg* 59: 32-39, 1983
 - 20) 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
 - 21) 寺尾栄夫, 早川 勲: 外頸動脈—S状静脈洞瘻. *臨神経* 3: 122-126, 1963
- [別刷請求先: 〒113 東京都文京区千駄木1-1-5, 日本医科大学脳神経外科, 山下陽一]