前頭蓋窩硬膜動静脈奇形

松原 年生, 和賀 志郎, 小島 精
丹羽 恵彦, 村田 浩人

Dural Arteriovenous Malformation in the Anterior Fossa

Toshio MATSUBARA, M.D., Shiro WAGA, M.D., DMSc, Tadashi KOJIMA, M.D., DMSc,
Shigehiko NIWA, M.D., and Hiroto MURATA, M.D.

Department of Neurosurgery, Mie University School of Medicine, Tsu, Japan

Summary : Dural arteriovenous malformations (AVM's) in the anterior fossa are not as rare as heretofore reported.

The authors experienced four cases of dural AVM in the anterior fossa over a period of 10 years: 3 of 4 patients had frontal intracerebral and/or subarachnoid hemorrhagic and one of them developed hemorrhagic attacks twice in a month. The other suffered from headache and chemosis without hemorrhage.

Angiographically, the AVM's were all fed by the anterior ethmoidal artery, either unilaterally or bilaterally; the external carotid system also sent the feeders. The draining veins were all pial with vascular sacs and finally reached the dural venous sinuses through ascending superficial and/or deep venous channels. One had an unruptured aneurysm at the origin of the ophthalmic artery.

All the AVM's were excised with microsurgery. The nidus was located in the dura or between the dura and bone. In one case, ethyl-cyanoacrylate was intraoperatively injected into the nidus from which uncontrollable bleeding developed, and the procedure is quite useful as operative adjuvant. All the patients have returned to their jobs.

Review of the pertinent literature reveals the following clinical characteristics:

- 1) AVM's are not so very rare,
- 2) 82% of the cases are male,
- 3) 89% of the cases have intracranial hemorrhages, a great majority of which are intracerebral and/or subarachnoid,
- 4) all are fed by the anterior ethmoidal arteries, with 46% incidence of contralateral feeding vessels,
- 5) the draining venous system includes the pial pathway in 100% of the cases, with association of vascular sacs (96%), which could be attributed to the source of hemorrhage, and
- 6) excision is the choice of treatment and operative results are good.

Key words :

- anterior ethmoidal artery
- anterior fossa
- dural arteriovenous malformation
- intracranial hemorrhage
- surgical treatment

はじめに

硬膜動静脈奇形(以下 dAVM)は横・S 状静脈洞部や海綿静脈洞部に多く、前頭蓋窩には非常にまれであるとされ

ていたが、近年、報告例が散見され、以前ほどまれではない。今回我々は過去 11 年間に 4 例の前頭蓋窩硬膜動静脈奇形を経験したので、各症例を報告し、自験例とこれまでの報告例を合わせ、その臨床的特徴について考察する。

症 例

<症例1> 46歳，男性．

突然の激しい頭痛後，数分間の意識消失をきたし，近医で腰椎穿刺にてクモ膜下出血と診断された．1ヵ月後当科に精査入院した．右前頭部に浅側頭動脈の拡張蛇行がみられた．CTでは，右前頭葉に低吸収域がみられた．脳血管撮影では，右前頭蓋窩前半部にdAVMが認められた(Fig. 1)．導入動脈は，同側の前篩骨動脈，中硬膜動脈および浅側頭動脈であり，nidusは，vascular sacを伴った皮質静脈を介して上矢状静脈洞へ還流していた．患者は，入院10日後，意識障害をきたした．CTで右前頭葉脳内出血がみられた．右前頭開頭にて顕微鏡下に，vascular sacを含めdAVMを凝固切除した．術後脳血管撮影ではdAVMは造影されず，神経欠落症状なく退院した．なお，この症例は別に報告した¹⁾．

<症例2> 55歳，男性，教師．

突然の激しい頭痛をきたし，他院で腰椎穿刺にてクモ膜下出血と診断されて，14日後に当科に入院した．神経学的には，頭痛以外には異常を認めなかった．CTでは，右前頭葉に底吸収域がみられた．脳血管撮影では，右前頭蓋底前半部に右前篩骨動脈を導入動脈とし，皮質静脈を介して上矢状静脈洞へと導出されるdAVMが認められ，導出静脈には2個のvascular sacが認められた(Fig. 2上段)．右前頭開頭にて，vascular sacを含め導出静脈を凝固切除し，さらに導入動脈およびnidusを凝固切除した．術後脳血管撮影では，dAVMは造影されず，術前拡張していた右眼動脈の径はほぼ正常に戻っていた(Fig. 2下段)．患者は3週間後に退院し，教職に復した．

<症例3> 55歳，男性，教師．

頭痛，意識障害をきたし，当科に入院した．神経学的には，意識レベル10(JCS)，右不全片麻痺がみられた．CTでは，左前頭葉脳内出血が認められた．脳血管撮影では，前頭蓋底前半部に両側の前篩骨動脈を導入動脈とし，皮質静脈を介して上矢状静脈洞およびシルビウス静脈へと導出されるdAVMが認められた(Fig. 3)．各導出静脈に1個ずつのvascular sacがみられた．左眼動脈は拡張し，内頸動脈との分岐部に脳動脈瘤が認められた．発症翌日に，両側前頭開頭を施行した．左前頭蓋底正中中部から上矢状静脈洞に向かって左前頭葉表面を走行する導出静脈をvascular sacを含め凝固切除した．さらに左前頭蓋底から浅シルビウス静脈へ走る導出静脈とvascular sacを凝固しようとしたがvascular sacは左前頭蓋窩最内側の陥凹部にあり十分に凝固できなかった．そこで左前頭蓋窩硬膜内の導入動脈を凝固したが，vascular sacは縮小しなかった．そのため直接nidusを凝固すると，nidusから多量の出血がおこった．上方からcottonoidにて圧迫しつつ，ethyl-cyanoacrylateを注射針にて直接nidusに注入するという方法で塞栓術を施行した．速やかに出血は止まり，vascular sacも縮小し，これを凝固切除した．術後脳血管撮影に問題なく，左内頸動脈-眼動脈瘤もクリッピングを施行し，患者は教壇に復帰した．

<症例4> 38歳，男性．

10年来の右前頭部痛のために精査入院した．神経学的には，両側結膜充血，右浅側頭動脈の拡張蛇行がみられ，前頭部でのbruitが聴診された．頭蓋単純写では，前頭部で血管溝の拡大がみられた．造影CTでは，右前頭葉，シルビウス裂に曲線および円形の増強陰影がみられ，MRI

Fig. 1 Case 1. A: Right internal carotid angiogram, lateral view. B: Right external carotid angiogram, lateral view. The anterior ethmoidal artery, the middle meningeal artery and the superficial temporal artery feed the dAVM in the anterior fossa. A vascular sac of the draining cortical vein is seen. Reproduced with Publisher's Permission.

Fig. 2 Case 2. A, B: Preoperative right carotid angiograms, anteroposterior, lateral view. These angiograms reveal a dAVM in the anterior fossa, which is fed by the anterior ethmoidal artery and drained into the superior sagittal sinus by a cortical vein with vascular sacs. C, D: Postoperative angiograms reveal no dAVM.

Fig. 3 Case 3. A: Right carotid angiogram, anteroposterior view. B: Left carotid angiogram, anteroposterior view. C: Right carotid angiogram, lateral view. D: Left carotid angiogram, lateral view. A dAVM with vascular sacs in the anterior fossa is seen. The bilateral anterior ethmoidal arteries feed the dAVM. An arterial aneurysm is found at the junction of the left internal carotid artery and the ophthalmic artery.

では、同部に flow void がみられた (Fig. 4). 脳血管撮影では、前頭蓋底前半部に dAVM が認められた (Fig. 5). 導入動脈は、両側前篩骨動脈、右中硬膜動脈、右浅側頭動脈であり、dAVM は、皮質静脈を介して上矢状静脈洞へ、シルビウス静脈を介して海綿静脈洞へと還流された。後者に vascular sac がみられた。右前頭開頭を行った。外頸動脈系の導入動脈は、硬膜切開の前に凝固した。vascular sac を伴った赤い浅シルビウス静脈と前頭葉下面に拡張した小静脈群とがみられた。前頭葉と前頭蓋底との bridging vein を凝固切断した後、硬膜内および硬膜と骨の間に存在する導入動脈を凝固切除した。vascular sac は青くなり縮小した。術後脳血管撮影では、問題なく、頭痛、結膜充血は消失し神経脱落症状なく退院した。

考 察

前頭蓋窩硬膜動静脈奇形については、40 数例の報告がみられるが、その2/3は最近の10年間のものである。詳細の明らかな24例¹⁾⁻¹⁹⁾と自験例4例の計28例についてその臨床的特徴を検討する。

Fig. 4 Case 4. A, B: Contrast enhanced CT scans show curved linear and round enhanced lesions in the right frontal lobe and the right Sylvian fissure. C, D: MR images (TR=2000 msec, TE=100 msec) show flow voids in the same regions.

Fig. 5 Case 4. A: Right carotid angiogram, anteroposterior view. B: Left carotid angiogram, anteroposterior view. C: Right carotid angiogram, lateral view. D: Right external carotid angiogram, anteroposterior view. E, F: Right external carotid angiogram, lateral view. These angiograms demonstrate a dAVM in the anterior fossa, which is fed by the bilateral anterior ethmoidal arteries, the right middle meningeal artery and the right superficial temporal artery and has a vascular sac in the cortical draining vein.

性差については、男 23 例 (82%), 女 5 例 (18 %) と男に多い。これは、海綿静脈洞部のものが女に多く (女 81 %), 横・S 状静脈洞部のものが性差がない (女 56 %) ²⁰⁾ のと異なる。

年齢分布では、50 歳から 60 歳代に 21 例 (75 %) と多く、平均は 57 歳である。太田ら ²⁰⁾ の頭蓋内 dAVM の平均発症年齢 46.8 歳に比べて 10 歳年齢が高い。

発症形式では、25 例 (89 %) が、前頭葉脳内出血、クモ膜下出血などの頭蓋内出血で発症している (Table 1)。これは、頭蓋内 dAVM の出血が 15 % である ²¹⁾ のと比較すると高率である。非出血例では、眼球突出、頭痛が初発症状であった。

導入動脈では、全例で前篩骨動脈が関与し、13 例 (46 %) で nidus の対側の前篩骨動脈も関与していた。外頸動

脈系からも 6 例 (21 %) 関与していた (Table 2)。脳血管撮影の際、両側の内頸動脈および外頸動脈の選択的血管撮影を要することが示唆された。

導出静脈では、全例が皮質静脈を介しており、24 例 (86 %) は上矢状静脈洞、5 例 (18 %) が脳底静脈に還流された (Table 3)。複数の導出路を持つものは 7 例 (25 %) であった。Houser ら ²²⁾ によると頭蓋内 dAVM では皮質静脈介して導出されるのは 21 % であり、皮質静脈を介して導出されるのは、前頭蓋窩 dAVM の特徴である。

vascular sac を伴ったものは 27 例 (96 %) であり、それ

Table 1 Onset in patients with anterior fossa dural AVM (n=28)

Onset	No. of cases
ICH	7
SAH	5
SDH	2
ICH & SAH	7
ICH & SDH	3
SAH & SDH	1
Exophthalmos	2
Headache	1

ICH: intracerebral hemorrhage
SAH: subarachnoid hemorrhage
SDH: subdural hematoma
intracranial hemorrhage: 25 (89%)

Table 2 Feeding arteries in patients with anterior fossa dural AVM (n=28)

Feeding artery	No. of cases
Anterior ethmoidal artery	15
*Anterior ethmoidal artery	13
Posterior ethmoidal artery	2
*Posterior ethmoidal artery	4
Middle meningeal artery	4
Superficial temporal artery	3
External carotid artery	1
Internal maxillary artery	1
*Internal maxillary artery	1

*bilateral feeding: 13 (46%)
Anterior ethmoidal artery: 28 (100%)
External carotid artery system: 6 (21%)

Table 3 Draining systems in patients with anterior fossa dural AVM (n=28)

Draining veins	No. of cases
Superior sagittal sinus via cortical vein	24
Basal vein	5
Sylvian vein	3
Cavernous sinus via cortical vein	2
Transverse sinus via sphenopetrosal vein	2
Vein of Labbé	1

cases with vascular sacs: 27 (96%)

らの89%が頭蓋内出血をきたしていた。石光ら⁶⁾、古賀¹¹⁾、武田ら¹⁵⁾の例では、このvascular sacが出血源であったとしているが、片山ら⁸⁾、Kobayashiら¹⁰⁾はvascular sacと血腫とは関係なく、出血源が皮質導出静脈であった例を報告している。我々の症例では、vascular sacが出血源であると断定できるほど血腫とvascular sacとの密接な関係はなかった。Malikら²¹⁾は頭蓋内出血をきたした頭蓋内dAVMのうちvascular sacを伴っていたものは42%であったと報告している。Houserら²²⁾はpial veinを導出静脈とするdAVMは出血しやすいとしているが、前頭蓋窩dAVMでは全例でpial veinが導出静脈であり、頭蓋内出血については、vascular sacを形成するほどの皮質導出静脈圧上昇に問題があると考えられる。いずれにしても頭蓋内出血とvascular sacは前頭蓋窩dAVMの大きな特徴である。

出血例の大部分は顕微鏡下に手術を受けている。excision^{1) 6) 8) 9) 16) 17)}、feeder & nidus coagulation + drain-
er dissection^{2) 3) 4) 10) 11) 15)}、nidus coagulation^{7) 18)}、feeder
clipping¹⁹⁾が行われ、良好な結果が得られている。前頭蓋
窩dAVMの術後再発の報告はない。Malikら²¹⁾、古賀ら¹¹⁾は、完全摘出せずとも、cortical drainageを中断させ出
血を起しにくくすることが手術の目的であるとしている。
我々は、できるだけ完全摘出を行っている。手術時に留意
することとして、intracranial approachの際、手前にある
導出静脈およびvascular sacが先にみられ、それらが妨
げとなり、その奥の前頭蓋窩のnidusおよび導入動脈である
前篩骨動脈の処理が困難である点が挙げられる。そのため
導出静脈系を最初に処理せざるをえないことがある。凹
凸のある前頭蓋窩硬膜内に存在するnidusからの術中出血
は、bipolar coagulationにて止血し難いことがあり、この
場合、症例4での経験から、直接nidusへethyl-
cyanoacrylateを注入する塞栓術が有用である。術中の出
血を少なくするために、Winterら¹⁹⁾は眼窩経由にて導入
動脈の処理を行い、鏡谷ら²⁾は術前に眼動脈から塞栓術を
行い良好な結果を得ている。術中のnidusからの出血は止
血困難なことがあり、出血に対する手段を用意することが
重要である。

結 語

前頭蓋窩dAVMの自験例の4例を報告し、それらと文
献上の24例、計28例から前頭蓋窩dAVMの臨床的特徴
について検討した。

前頭蓋窩dAVMは、1)非常にまれなものではなく、2)
男に多く(82%)、3)頭蓋内出血で発症しやすく(89%)、
4)前篩骨動脈を導入動脈とし(100%)、皮質静脈を介して
(100%)、上矢状静脈洞(86%)、脳底静脈(18%)などに

導出され、5)皮質導出静脈にvascular sacを伴い(96%)、
6)intracranial approachによるdAVMの摘出にて、予後
は良好である。

文 献

- 1) Waga S, Fujimoto K, Morikawa A, *et al*: Dural arteriove-
nous malformation in the anterior fossa. *Surg Neurol* 8:
356-358, 1977
- 2) 鏡谷武雄, 上山博康, 村田純一, ほか: 特異な draining
veinを有した前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の1例. *Neurol Med
Chir (Tokyo)* 27: 1195-1200, 1987
- 3) Bitoh S, Nakagawa H, Arita N, *et al*: Dural arteriovenous
malformation in the anterior fossa. Case report. *Neurol
Med Chir (Tokyo)* 21: 131-134, 1981
- 4) Dardenne GJ: Dural arteriovenous anomaly fed by
ethmoidal arteries. *Surg Neurol* 10: 384-388, 1978
- 5) Driesen W, Elies W: Über drei Fälle intrakranieller arter-
iovenöser Mißbildungen mit arterieller Versorgung aus der
Arteria ethmoidea anterior. *Neurochirurgia (Stuttg)* 15:
178-181, 1971
- 6) 石光 宏, 西本 健, 原田泰弘, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静
脈奇形, 比較的若年時での破裂発作が疑われた1症例の報
告と文献的考察. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 26: 822-828,
1986
- 7) Ito J, Imamura H, Kobayashi K, Tsuchida T, *et al*: Dural
arteriovenous malformations of the base of the anterior cra-
nial fossa. *Neuroradiology* 24: 149-154, 1983
- 8) 片山容一, 坪川孝志, 森安信雄, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静
脈奇形—1 治験例と文献的考察—. *脳神経外科* 8: 1079-
1085, 1980
- 9) Kidooka M, Nakasu S, Nakasu Y, *et al*: Dural arteriove-
nous malformation in the anterior cranial fossa. Report of a
case. *Arch Jpn Chir* 51: 1040-1046, 1982
- 10) Kobayashi N, Hayashi M, Noguchi Y, *et al*: Dural arter-
iovenous malformations in the anterior cranial fossa. *Surg
Neurol* 30: 396-401, 1988
- 11) 古賀壽男, 藤井清孝, 桃崎宣明, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静
脈奇形の1例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 27: 144-149, 1987
- 12) Lepoie J, Montaut J, Bouchot M, *et al*: Anévrismes arté-
rio-veineux intrafrontaux vascularisés par l'artère
ethmoidale antérieure. A propos de trois observations.
Neurochirurgie 9: 159-166, 1963
- 13) Newton TH, Troost BT: Arteriovenous malformations and
fistulae. In: Newton TH, Potts DG (eds), *Radiology of the
Skull and Brain*, CV Mosby, Saint Louis, 1974, pp
2490-2565
- 14) Pradat P, Doyon D, Navarro-Artiles G, *et al*: Anévrisme
artério-veineux sous-dural de la gouttière olfactive. *Neuro-
chirurgie* 14: 923-930, 1968
- 15) 武田直也, 藤田稠清, 近藤 威, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静
脈奇形の1例. *脳神経外科* 15: 1025-1030, 1987
- 16) Terada T, Kikuchi H, Karasawa J, *et al*: Intracerebral
arteriovenous malformation fed by the anterior ethmoidal
artery. Case report. *Neurosurgery* 14: 578-582, 1984
- 17) Tiyyaworabun S, Vonofakos D, Lorenz R: Intracerebral
arteriovenous malformation fed by both ethmoidal arteries.
Surg Neurol 26: 375-382, 1986
- 18) 徳永孝行, 林 隆士, 正島和人, ほか: くも膜下出血で発
症した前頭蓋底部の硬膜動静脈奇形の1治験例. *脳神経外
科* 14: 1391-1395, 1986

- 19) Winter A, Yeager H, Bastidas J: Cerebral vascular hemorrhage: A new surgical approach. *Vasc Surg* **8**: 95-106, 1974
- 20) 太田富雄, 梶川 博: 硬膜動静脈奇形. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **18** [Part II]: 439-472, 1978
- 21) Malik GM, Pearce JE, Ausman JI, *et al*: Dural arteriovenous malformations and intracranial hemorrhage. *Neurosurgery* **15**: 332-339, 1984
- 22) Houser OW, Baker HL Jr, Rhoton AL Jr, Okazaki H: Intracranial dural arteriovenous malformations. *Radiology* **105**: 55-64, 1972