血管撮影にて動静脈奇形の所見を呈し，組織学的に静脈性血管腫と診断された脳血管奇形の2例

伊東山 洋一，池田 順一，福村 昭信*
倉津 純一，生塩 之敬

Angiographical Arteriovenous Malformation Histologically Verified as Venous Angioma: Report of Two Cases

Youichi ITOYAMA, M.D., Jun-ichi IKEDA, M.D., Akinobu FUKUMURA, M.D.,*
Jun-ichi KURATSU, M.D., and Yukitaka USHIO, M.D.

Department of Neurosurgery, Kumamoto University Medical School, Kumamoto, and

*Department of Neurosurgery, Shimonoseki Kosei Hospital, Shimonoseki, Japan

Summary: In the classification of cerebral vascular malformations, a mixed or transitional type of malformation has come to be recognized as distinct from the classical assortment, that is, AVM, capillary telangiectasia, cavernous angioma and venous angioma. We recently experienced two cases in which findings of cerebral angiography indicated arteriovenous malformation; however, histological examination of the lesion showed a typical venous angioma. We could not find a report of a similar case in the literature. We consider that these two cases belong to a transitional or mixed type of cerebral vascular malformation composed of arteriovenous malformation and venous angioma.

Key words:

- cerebral vascular malformation
- AVM
- venous angioma
- mixed angioma

はじめに

脳血管奇形に関しては従来の 1) arteriovenous malformation (AVM) 2) capillary telangiectasia 3) cavernous angioma 4) venous angioma という分類¹⁹⁾から，各 type の移行型，もしくは混合型を認める分類⁷⁾へと変化しつつあり，実際症例報告も増加している．最近我々は血管撮影にて脳動静脈奇形 (AVM) の所見を呈し，組織学的に静脈性血管腫 (CVA; cerebral venous angioma) と診断された脳血管奇形の2例を経験したので，文献的考察を加えて報告を行う．

症 例

＜症例1＞ 21歳，男性．

既往歴，家族歴に特記すべき点を認めない．1987年6月

21日，頭痛，気分不良に続き意識障害をきたし緊急入院となった．神経学的には自発開眼はあったが，右片麻痺，全失語症を認めた．CT スキャンにて左側頭-頭頂葉に大きな脳内血腫を認めた (Fig. 1)．血管撮影にて明らかな異常血管のないことを確認し，緊急開頭血腫除去術を施行した．術後，右片麻痺，失語症の改善は速やかであった．発症約1ヵ月後に行った血管撮影にて，左 posterior temporal artery より栄養され，Trolard vein に注ぐ AVM を認め (Fig. 2A, B)，摘出術を施行した．術中所見では血管奇形は血腫腔壁に存在し，posterior temporal artery より栄養される無数の小血管が脳実質内に存在し，Trolard vein が red vein となっていた．血管奇形摘出終了後，red vein の色調が黒色に変色したことを確認した．組織学的には血管奇形の実質部のいずれの部分にも動脈成分はほとんど認められず，構成する血管の大部分は内皮細胞との周囲にわず

かな弾性線維網を含む疎性結合組織で囲まれた拡張した細静脈であった。また間に脳実質が存在したが著明な変性傾向が認められた(**Fig. 3**)。組織診断は venous angioma であった。術後経過は順調で多少の運動性失語症を残したが、運動麻痺はほぼ全快し、リハビリ目的で8月4日転院となった。術後血管撮影にて血管奇形の完全な消失を認めた。

<症例2> 32歳、女性。

既往歴、家族歴に特記すべき点を認めない妊娠5ヵ月の女性である。1988年7月12日、なんら誘因なく急に激しい頭痛が起こった。近医を受診し、CTスキャンにて、右側頭-後頭葉脳内血腫を認めた(**Fig. 4**)。血管撮影では posterior temporal artery より栄養され横静脈洞に注ぐAVMを認めた(**Fig. 5**)。8月12日、開頭にて血腫、血管奇形摘出術を施行した。組織学的所見では症例1と同様に脳実質内に多数の小静脈の集合を認めたが、動脈成分はほとんど

Fig. 1 CT scan of Case 1 on admission showing a large intracerebral hematoma in the left temporo-parietal lobe.

認められなかった(**Fig. 6**)。また髄膜に少数の動脈成分を認めたものの、血管奇形との関連は不明であった。結局、組織学的診断は venous angioma と結論された。術後経過は順調で、正常分娩にて第3子を娩出、その後血管撮影にて脳血管奇形の消失を確認した。

考 察

脳静脈性血管腫(CVA: cerebral venous angioma)の血管撮影所見に関する報告は1967年、Wolf らによって初めてなされた²⁵⁾。以来、CVA は脳血管奇形の中でもまれな疾患であるとされてきたが^{1) 9) 16) 20) 21)}、一方では剖検例において、CVA が脳血管奇形の中で最も頻繁に認められることが報告されている^{11) 12)}。さらにCTの出現以来、CVA に関する報告が増加しつつある²³⁾。

従来、脳血管奇形に関しては Russel and Rubinstein¹⁹⁾、McCormick ら¹⁰⁾による分類、すなわち 1) arteriovenous malformation(AVM) 2) capillary telangiectasia 3) cavernous angioma 4) venous angioma の4型を基準にする考えが一般的であった。脳血管奇形は基本的にはすべてAVMに分類すべきであるとする説がある一方で^{4) 24)}、CVA は原則的には動脈成分の関与を認めないといわれてきた^{1) 3) 10) 20)}。

一方、相異なる type の血管奇形が共存したという報告も散見される^{2) 5) 6) 8) 18)}。例えば telangiectases と cavernous angioma との合併が Diamond ら²⁾、Roberson ら¹⁸⁾によって報告されている。また Hirsh⁶⁾が cavernous angioma と AVM との合併例を報告しており、Hirata ら⁵⁾は AVM と CVA とが合併したと考えられる症例について報告を行っている。Lobato ら⁸⁾が検討を行った血管撮影で描出されない頭蓋内血管奇形21例の中で4例が mixed angioma であって、その中の3例は AVM と cavernous angioma との合併例であった。一方、従来のCVAの中にも血管撮影にて明らかに動脈成分の関与を認めたという報

Fig. 2 Left carotid angiography showing a vascular lesion fed by the posterior temporal artery (arrow) and draining to Trolard vein (A: arterial phase, B: venous phase).

Fig. 3 Photomicrograph of the surgical specimen showing a collection of numerous small veins and no artery in the cerebral parenchyma (Elastica Van-Gieson stain: ×100).

Fig. 5 Right carotid angiography showing a vascular lesion fed by the posterior temporal artery and draining to the transverse sinus (arrow).

Fig. 4 CT scan of Case 2 on admission showing a large intracerebral hematoma in the right temporo-occipital lobe.

Fig. 6 Photomicrograph of the surgical specimen showing a collection of numerous veins and no artery (Elastica Van-Gieson stain: ×100).

告も多く見られるようになった⁹⁾¹³⁾¹⁵⁾¹⁷⁾²¹⁾²²⁾²⁴⁾²⁵⁾。さらにCVAの術中にred veinを認めたという報告もあり、血流増加に伴う酸素摂取率の低下によってred veinが出現したのではないかと考察されている¹⁷⁾。Moritakeらはvenous angiomaをearly-filling vesselsを伴うものと伴わないものに分類する必要があると述べた¹³⁾。またHuangらはCVA自験36例中5例(14%)がarterial componentを有したと述べている⁷⁾¹⁴⁾。

1984年、Huangら⁷⁾は脳血管奇形に関して

- 1) Those that involve feeding arteries and draining veins
- 2) Those that primarily involve capillaries
- 3) Those that primarily involve veins
- 4) Any combination of the above

の4型に分類することを提案し、さらに3)に含まれるmedullary venous malformationをarterial componentを有するものと、有しないものに分類した。Huangらの分類で注目される点は異なるtypeの混合型に属する脳血管奇形の存在を認めていることである。同じく1984年に、McCormickは従来の脳血管奇形の4型のそれぞれの移行型を認める論文を発表している¹²⁾。

さて我々の症例のごとく血管撮影にてAVMの所見を呈し、組織学的にCVAと診断された症例に関する報告はきわめてまれであった。血管撮影にて動脈成分の関与を認めるが組織学的に動脈成分を確認できない理由として、動脈成分が脳血管奇形の周辺に存在したために組織標本に含まれなかったのではないかという意見もある³⁾²⁴⁾。今回我々が報告した2例における血管撮影所見と組織学的所見とのdiscrepancyを正確に説明することは困難であるが、組織学的検索を十分行ったにもかかわらず血管奇形の実質部分に動脈成分をほとんど認めなかったことから、HuangらのいうところのAVMとCVAとのmixed typeに属す

る脳血管奇形と考えるのが最も妥当ではないかと思われた。今後さらに症例を重ねて検討する必要がある、さらに脳血管奇形の発生時期に関しても再考察が必要と思われる¹⁴⁾。

文 献

- 1) Cabanes J, Blasco R, Garcia M, *et al*: Cerebral venous angioma. *Surg Neurol* **11**: 385-389, 1979
- 2) Diamond C, Torvik A, Amundsen P: Angiographic diagnosis of telangiectases with cavernous angioma of the posterior fossa. *Acta Radiol Diagn* **17**: 281-288, 1976
- 3) Fierstien SB, Pribram HW, Hieshima G: Angiography and computed tomography in the evaluation of cerebral venous malformations. *Neuroradiology* **17**: 137-148, 1979
- 4) Hamby WB: The pathology of supratentorial angiomas. *J Neurosurg* **15**: 65-75, 1958
- 5) Hirata Y, Matsukado Y, Nagahiro S, *et al*: Intracerebral venous angioma with arterial blood supply: A mixed angioma. *Surg Neurol* **25**: 227-232, 1986
- 6) Hirsh LF: Combined cavernous-arteriovenous malformation. *Surg Neurol* **16**: 135-139, 1981
- 7) Huang YP, Robbins A, Patel SC, *et al*: Cerebral venous malformations and new classification of cerebral vascular malformations. *In*: Kapp JB(ed), *The Cerebral Venous System and Its Disorders*, Grune & Stratton, Orlando, 1984, pp 373-474
- 8) Lobato RD, Perez C, Rivas JJ, *et al*: Clinical, radiological, and pathological spectrum of angiographically occult intracranial vascular malformations. Analysis of 21 cases and review of the literature. *J Neurosurg* **68**: 518-531, 1988
- 9) Maehara T, Tasaka A: Cerebral venous angioma: Computerized tomography and angiographic diagnosis. *Neuroradiology* **16**: 296-298, 1978
- 10) McCormick WF: The pathology of vascular ("arteriovenous") malformations. *J Neurosurg* **24**: 807-816, 1966
- 11) McCormick WF, Hardman JM, Boulter TR: Vascular malformations (angiomas) of the brain, with special reference to their occurring in the posterior fossa. *J Neurosurg* **28**: 241-251, 1968
- 12) McCormick WF: Pathology of vascular malformations of the brain. *In*: Wilson CB(ed), *Intracranial Arteriovenous Malformation*, Williams & Wilkins, Baltimore, 1984, pp 44-63
- 13) Moritake K, Handa H, Mori K, *et al*: Venous angiomas of the brain. *Surg Neurol* **14**: 95-105, 1980
- 14) 奥寺利男, Huang YP, 林 隆士, ほか: 脳血管造影から見た cerebral vascular malformation の最近の考え方—medullary venous malformation を中心に—. *脳と発達* **17**: 126-137, 1985
- 15) Pardatscher K, Fiore DL, Galligioni F, *et al*: Diagnosis of cerebral venous angioma by rapidly enhanced CT scan. *Surg Neurol* **14**: 111-113, 1980
- 16) Partain CL, Guinto FC, Scatliff JH, *et al*: Cerebral venous angioma: Correlation of radionuclide brain scan, transmission computed tomography, and angiography. *J Nucl Med* **20**: 1166-1169, 1979
- 17) Preissig RS, Preissig SH, Goree JA: Angiographic demonstration of a cerebral venous angioma. Case report. *J Neurosurg* **44**: 628-631, 1976
- 18) Roberson GH, Kase CS, Wolpow ER: Telangiectases and cavernous angiomas of the brain stem: Cryptic vascular malformations. Report of a case. *Neuroradiology* **8**: 83-89, 1974
- 19) Russell DS, Rubinstein LJ: *Pathology of Tumors of the Nervous System*, ed 4. Edward Arnold, London, 1977, pp 127-145
- 20) Saito Y, Kobayashi N: Cerebral venous angioma. *Radiology* **139**: 87-94, 1981
- 21) Sarwar M, McCormick WF: Intracerebral venous angioma. Case report and review. *Arch Neurol* **35**: 323-325, 1978
- 22) 園田 寛, 吉田顕正, 大塚忠弘, ほか: 動脈成分を有する脳静脈性血管腫に末梢性動脈瘤を合併した1例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **28**: 838-842, 1988
- 23) Valavanis A, Wellauer J, Yasargil MG: The radiological diagnosis of cerebral venous angioma: Cerebral angiography and computed tomography. *Neuroradiology* **24**: 193-199, 1983
- 24) Wendling LR, Moore JS Jr, Kieffer SA, *et al*: Intracerebral venous angioma. *Radiology* **119**: 141-147, 1976
- 25) Wolf PA, Rosman NP, New PFJ: Multiple small cryptic venous angiomas of the brain mimicking cerebral metastases. A clinical, pathological, and angiographic study. *Neurology(Minneap)* **17**: 491-501, 1967