私の手術法

小脳半球 large AVM の 1 例

阿 部 弘,^{*1} 三 森 研 自,^{*1} 中 川 端 午^{*1}
都 留 美 都 雄,^{*2} 宮 坂 和 男^{*3}

Treatment of Large and High Flow Cerebellar AVM: Case Report

Hiroshi ABE, M.D.,^{*1} Kenji MITSUMORI, M.D.,^{*2} Tango NAKAGAWA, M.D.,^{*2}
Mitsuo TSURU, M.D.,^{*2} and Kazuo MIYASAKA M.D.^{*3}

*Departments of ^{*1}Neurosurgery and ^{*3}Radiology, Hokkaido University
School of Medicine, and ^{*2}Hokkaido Neurosurgical Memorial Hospital,
Sapporo, Japan*

Summary : In this paper, the case of a large-high flow cerebellar AVM, which was totally removed in a two-stage operation, is reported. The patient, a thirteen-year-old girl complaining of headache, vomiting and unconsciousness, was admitted to our hospital in a coma and suffering from decerebrate rigidity.

Computerized tomography (CT) scans demonstrated a massive hematoma in the vermis and the forth ventricle. Posterior fossa craniectomy and removal of the hematoma were performed immediately. Then a V-P shunt was performed for hydrocephalus. The patient gradually improved. Cerebral angiography showed a large high-flow AVM occupying the whole left cerebellar hemisphere, which was fed by Lt AICA and Lt SCA. Bilat PCA and Rt SCA could not be found. The two-stage operation was designed to protect against normal perfusion pressure breakthrough. Total removal of the AVM was decided on. At first artifical embolization was undertaken, until normal circulation was seen. Then by reopening the previous suboccipital craniectomy the AVM was totally removed. Thus the left cerebellar hemisphere, including the deep cerebellar nuclei, was lost. Postoperative neurological positive findings were slightly Lt limb ataxia and truncal ataxia, but she can walk alone and now is going to school again.

The surgical indication and operative technique for posterior fossa AVMs are discussed, and the literature on these subjects is reviewed in this paper.

Key words :

- AVM
- cerebellar
- large and high flow
- posterior fossa

はじめに

CT, MRI, DSA などの開発, 普及による画像診断法ならびに顕微鏡手術の進歩により, 脳動静脈奇形(以下 AVM と略す)に対する手術治療成績の向上は目ざましいものがある。しかし, 手術適応においては, AVM の占める部位, 大きさ, および flow が重要な問題となり, 必ずしも手術治療が容易とはいえない。後頭蓋窩 AVM は出

血により発症する頻度が高く, かつ生命維持に重要な部位が存在しているだけに, 根治的治療が要求される。

著者らは出血により発症した小脳の巨大かつ high flow AVM に対し, まず血腫除去, 次いで artifical embolization, その後, 再び後頭下開頭により AVM の全摘出を行い, ごく軽度の小脳失調を残して社会復帰した 1 例を経験した。この症例を報告し, 後頭蓋窩 AVM 治療の問題点につき述べる。

^{*1}北海道大学 脳神経外科, ^{*2}北海道脳神経外科記念病院, ^{*3}北海道大学 放射線科

症 例

〈症 例〉 13歳，女子．

病歴および経過：昭和62年4月18日午後5時頃，学校でバレーボールの練習中，突然頭痛，めまいが出現し帰宅した．帰宅直後嘔吐が1回あり，その後床に入った．2時間ほどして母親が様子を見に行ったところ，本人はいびきをかいており呼んでもまったく目を覚まらなかった．ただちに救急車にて当院に午後9時頃搬入された．

入院時神経学的陽性所見として，①意識障害(Ⅲ-200)，②除脳硬直姿勢，③両側瞳孔縮小し対光反射消失，④眼球運動は右眼球正中位，左眼球やや正中上転位にて固定していた．⑤両側バビンスキ反射陽性を認めた．入院後CTスキャンにて vermis 中心に massive hematoma，小脳半球内に斑点状の石灰化，中等度の水頭症の所見を認めた(Fig. 1)．脳血管造影では，左小脳半球に巨大な AVM の所見を認めた．

以上の所見から，救命を目的としてただちに後頭下開頭により血腫除去ならびに右脳室ドレナージを行った．その際，AVM に対しては特に処置は行わなかった．術後意識障害は徐々に改善してきた．5月1日水頭症に対し，V-P shunt を施行した．術後のCTスキャンにて，血腫は除去されており左小脳半球は heterogenous enhancement を認めた(Fig. 2)．神経症状は改善し，左 limb および trunchal ataxia はみられるも独立歩行は可能となった．

術後再度脳血管造影を行った．左小脳半球の大部分を占める AVM があり，左上小脳動脈，左前下小脳動脈はいずれも拡張し，AVM の輸入動脈となっていた．両側の後大脳動脈および右上小脳動脈は造影されなかった．導出静脈は，inferior vermician vein から transverse sinus へ，および Galen 静脈，petrous sinus へ注ぐ，それぞれ太い3本の abnormal vein が主となっていた(Fig. 3)．以上の所見から，左小脳半球 large high flow AVM と診断した．

この large & high flow AVM に対し，全摘出術を2 stage で行うことを考えた．第一段階として，artificial embolization を行った．embolization は径2mm のシリコンボールを6月25日に左椎骨動脈経路に10個，7月2日右椎骨動脈経路に6個と2回に分け，計16個注入した．その時点で，注入前には造影されなかった両側後大脳動脈，右上小脳動脈および前下小脳動脈が造影されるようになった．したがって後頭蓋窩の循環が正常域に向かうようになったと判断し，embolization を終了した(Fig. 4)．引き続き AVM の全摘出術を行う予定でいたが，家族の同意が得られず，8月28日退院となった．以後外来的に経過観察していたところ，同年10月1日朝再び頭痛，嘔吐が出現し10月2日再入院となった．

Fig. 1 Plain CT scan showing a hematoma in the vermis and the fourth ventricle and small high-density spots suggesting calcification.

Fig. 2 Contrast-enhanced CT scan, after removal of hematoma and V-P shunt, an irregularly enhancing vascular nodule is seen in the left cerebellar hemisphere.

入院時，神経学的陽性所見として，軽度の左 limb およびごく軽度の trunchal ataxia を認めた．CT スキャンでは，前回出血の見られた部位に少量の血腫を認めた．家族の同意が得られ AVM の全摘出術を行った．

手術所見：S 62 年 10 月 29 日前回と同様に後頭下開頭を行った．左小脳半球を一塊として切除する方針で行った．まず左 AICA の retro-tonsillar branch を切断した．ついで小脳上前面を retract しながら左 SCA の trunk を clip，ついで左 AICA の trunk を clip しそれぞれ切断した．そ

Fig. 3 Bilateral vertebral angiograms. A large AVM occupying the whole left cerebellar hemisphere is seen. The bilateral PCAs and the right SCA and AICA are not seen, and the findings confirm to the high flow AVM. The dilated left SCA and AICA supply the AVM. **A:** Right vertebral angiograms. **B:** Left vertebral angiograms.
a: Antero-posterior view. **b:** Lateral view.

Fig. 4 Left vertebral angiograms after artificial embolization. The bilateral PCAs and the right SCA and AICA are appeared, which shows normal circulation. **A:** Antero-posterior view. **B:** Lateral view.

Fig. 5 Macrophotograph showing abnormal vessels occupying in the left cerebellum.

Fig. 6 Postcontrast CT scan after total removal of the AVM. The left cerebellar hemisphere is lost and does not show an enhancing area.

Fig. 7 Left vertebral angiograms after total removal of the AVM. The large AVM is not seen. A: Antero-posterior view. B: Lateral view.

Fig. 8 Three months after surgery. She goes to high school again.

れから3本の太いdraining veinを凝固切断し、lobectomyをするように小脳を切離し、左小脳半球を一塊のもとに摘出した。摘出した小脳半球の矢状断の標本では小脳半球内に瀰漫性に異常血管が存在している(Fig. 5)。

術後のCTスキャンでは左小脳半球の欠損を示す所見がみられる(Fig. 6)。術後の脳血管造影ではAVMは描出されず、両側の後大脳動脈、右SCA、右AICAが造影されている(Fig. 7)。術後小脳失調が術前に比して少し悪化した、まもなく術前と同程度となった。軽度の左小脳失調はみられるも独立歩行は可能であり、12月22日退院し、現在復学している(Fig. 8)。

考 察

脳動静脈奇形(以下AVMと略す)の発生頻度は、脳動脈瘤に比べると、約1:10の割合と言われている。中でも後頭頭蓋窩のAVMの頻度は全AVMの2~7%¹⁾²⁾と

少ないとされていたが、最近の報告では14~18%³⁾⁴⁾と増加している。

AVMについては、complete excisionが最良の方法であることは衆知の事実である。しかしながら、診断技術の進歩、microsurgical techniqueの導入により手術適応が拡大されてきているとはいえ、外科的治療の適応、限界については現在でも必ずしも意見の一致を見ていない。AVMの発症形式には、出血、痙攣のほか、虚血による神経脱落症状などがあるが、出血で発症することが多いと言われている⁵⁾。

AVMのnatural historyは破裂脳動脈瘤ほど知られていないが、最近の報告を見ると、Grafら⁶⁾は、初回出血の可能性は年間2~3%、一方再出血の生じる可能性は最初の1年間は6%、その後20年まで平均して年間約2%の危険があるとのことであり、AVMは出血した場合、再出血する可能性が高いと言える。Perretら²⁾によると、AVMの出血による死亡率は、初回発作では10%、2回目では13%、3回目になると20%と上昇すると言われるが、動脈瘤のそれに比べると低いと言える。後頭蓋窩のAVMに限ってみると、初回出血の死亡率は66.7%で、再出血するものが多く、再出血すれば大部分が死亡し、その予後が極めて悪いことをFulstら⁵⁾は報告している。

すなわち、現在AVMに対して治療を行う最大の理由は、本疾患に伴う頭蓋内出血の防止であるといっても過言ではない。著者らの症例は若年者であり、短期間に2回出血しており、その上、天幕上AVMに比し、後頭蓋窩AVMはその発生部位が生命維持に重要な部位であるがために、根治的治療が要求された。AVMに対する治療として、①全摘出術、②clipping of feeding arteries、③embolization、④radiation、⑤electrothrombosis等が挙げられている。しかしながら、全摘出術以外の治療法はincompleteといえる。

AVMの手術適応を考える際は、①占拠部位、②大きさが重要な点と言える。まず占拠部位について、後頭蓋窩AVMに限ってみると、術後の脱落症状を考えると、脳幹内を占拠するもの、小脳核に及ぶものは適応外と考えられている。一方、大きさは占拠部位と関連して問題となる。Drake⁴⁾はその大きさについて径5cm以上をlarge AVMとし、large AVMの手術で問題となるのは死亡率より術後に残る神経脱落症状であると述べている。またDrakeら⁴⁾は、後頭蓋窩AVM 66例について報告しているが、large AVMが9例あり、そのうち2例がholo hemisphericであったと報告している。菊池⁷⁾は、large AVMはその手術の困難さ、small AVMに比しそのbehaviorの異なる点などから、そのnatural historyを考え手術適応を考える上で特別に扱う必要があると述べている。著者らの症

例は確かにlarge AVMであるが、①天幕上ではなく、左小脳半球全部を占め、かつfeeding arteriesはすべて表面に存在するAVMであること。②初回出血後中等度の小脳失調症状が残っているが、左小脳半球を小脳核を含め一塊のもとに摘出しても術後の神経脱落症状は、不変であろうと予想されたことより手術適応と考えた。

後頭蓋手術の問題点を、杉田⁸⁾は①術野が狭い、②nidasの奥にfeederがある。③橋、延髄に接している。④正常脳幹枝とfeederの区別が困難。⑤術中の脳腫脹や術後出血が致命的となる。の5点を挙げている。著者らの症例は、画像診断により③④については問題なしと判断した。⑤については著者らの症例は、high flow AVMでもありnormal perfusion pressure breakthrough⁹⁾の点からも、最も注意を要すると考えた。

以上のことから、第一ステップとしてまずembolizationを行い、椎骨脳底動脈系をnormal circulationになるよう改善させた後、第二ステップとして後頭下開頭によりlarge AVMと化した左小脳半球を一塊として全摘出を行ったわけである。ちなみにembolizationに際しては、AVMに流入するfeeding arteries以外の正常血管を閉塞する可能性があり、やりすぎないように慎重に行い、normal circulationが見られた時点で終了すべきである。embolization、全摘出と2stageで行うにあたり、embolizationから全摘出までの期間は少なくとも1週間はあけることが望ましいと言われている¹⁰⁾。著者らの症例は、embolizationから全摘出までの期間が長すぎたが、その間にembolization後の循環動態が変わっていなかったのが幸いであった。

ま と め

出血で発症したlargeかつhigh flow小脳AVMに対し、まずembolizationによりnormal circulationとなるよう循環動態を改善させ、ついでAVMの全摘出を行った症例を報告した。後頭蓋窩AVM治療の問題点につき考察した。

文 献

- 1) Forster DMC, Steiner L, Hakanson S: Arteriovenous malformations of the brain; A long-term clinical study. J Neurosurg 37: 562-570, 1972
- 2) Perret G, Nishioka H: Report on the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage. Section VI. Arteriovenous malformations. An analysis of 545 cases of cranio-cerebral arteriovenous malformations and fistulae reported to the cooperative study. J Neurosurg 25: 467-490, 1966
- 3) Batjer H, Samson D: Arteriovenous malformation of the posterior fossa; Clinical presentation, diagnostic evaluation and surgical treatment. J Neurosurg 64: 849-856, 1986

- 4) Drake CD, Friedman H, Peerles SJ: Posterior fossa arteriovenous malformations. *J Neurosurg* **64**: 1–10, 1986
- 5) Fults D, Kelly DL: Natural history of arteriovenous malformations of the brain; A clinical study. *Neurosurgery* **15**: 658–662, 1984
- 6) Graf CJ, Perret GE, Torner JC: Bleeding from cerebral arteriovenous malformations as part of their natural history. *J Neurosurg* **58**: 331–337, 1983
- 7) 菊池晴彦: Large and high flow AVM. The 2nd Meeting of the Mt. Fuji Workshop on CVD, 1984, pp 95–103
- 8) 杉田虔一郎: 脳深部及び後頭蓋窩の AVM. *Neurosurgeons* **4**: 289–297, 1985
- 9) Spetzler RF, *et al*: Normal perfusion pressure breakthrough theory. *Clin Neurosurg* **25**: 651–672, 1977
- 10) Luessenhop AJ, Rosa L: Cerebral arteriovenous malformations. Indications for and results of surgery, and the role of intravascular techniques. *J Neurosurg* **60**: 14–22, 1984