けいれん発作にて発症した前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の1例

嶋田 淳一, 鈴川 活水, 天羽 正志, 浦上 信也*

Dural Arteriovenous Malformation in the Anterior Fossa with Seizure Attack

Junichi SHIMADA, M.D., Katsumi SUZUKAWA, M.D., Masashi AMOU, M.D., and Nobuya URAGAMI, M.D.*

Departments of Neurosurgery and *Neuroradiology, Misato Junshin Hospital, Misato, Japan

Summary: Dural arteriovenous malformations are estimated to comprise 10 to 15% of all intracranial AVMs. They are predominantly located at the base of the skull, especially in the posterior cranial fossa, and transverse-sigmoid sinuses are usually involved. They also occur in the cavernous sinus. However, dural AVMs involving the anterior cranial fossa are rarely documented and most cases have intracranial hemorrhages, a great majority of which are intracerebral and/or subarachnoid. Cases with seizure attack are very rare. We have recently experienced one such rare case which, was operated on and cured completely.

We report a case of dural arteriovenous malformation in the anterior fossa with seizure attack. A 55-year-old male was hospitalized because of seizure attack. This attack was the first episode for this patient. MRI disclosed the curvilinear flow void in the left frontal pole. Angiography revealed an AVM in the anterior cranial fossa, fed by the left anterior ethmoidal artery and drained by the left olfactory vein. The draining vein without vascular sac finally reached the dural venous sinuses. The diagnosis of dural AVM was made. A left frontal craniotomy was performed. Removal of nidus was abandoned due to its deeply seated location in the olfactory groove, so coagulation of the nidus and resection of the drainer were performed. On postoperative angiography the dural AVM was not visualized any more. The patient showed no neurological deficit.

Key words:

- dural arteriovenous malformation
- anterior fossa
- seizure attack
- anterior ethmoidal artery

はじめに

硬膜動静脈奇形は、横、S状静脈洞部や海綿静脈洞部に好発し、前頭蓋窩発生の症例は比較的まれである。前頭蓋窩発生例の出血率は他の発生部位例に比べ著しく高いことが報告され、出血以外の症状にて発症した症例はまれである。今回我々は、けいれん発作にて発症した前頭蓋窩発生硬膜動静脈奇形を経験したので報告する。

症 例

＜患 者＞ 55歳, 男性.

主 訴: 全身けいれん.

家族歴: 特記すべきことなし.

既往歴: 14歳時, 左前額部を打球にて打撲した.

現病歴: 1995年3月25日午後3時頃, 自宅で休息中に全身性の tonic-clonic seizure が出現し, 約5分間持続した後自然消失した. その後, 覚醒状態に復したものの失語

症状が見られ、ただちに救急搬送され入院となった。

入院時神経学的所見：自発語は非流暢で復唱不能であり、いわゆる Broca 失語を呈していた。

神経放射線学的所見：頭蓋単純写は異常所見を認めず、頭部 CT では単純、造影 CT ともに Cavum septi pellucidi et Vergae を認めるのみであった。しかし頭部 MRI においては冠状断にて左前頭極付近に縦走する flow void が認められた (Fig. 1, 2, 3)。脳血管写においては、左内頸動脈撮影において、left anterior ethmoidal artery を流入動脈として、cortical vein を流出静脈とする動静脈奇形の所見を認めた。cortical vein は拡張蛇行していたが、いわゆる vascular sac の所見はなく、そのまま superior sagittal sinus に流入していた (Fig. 4)。

脳波所見：入院 6 日目に施行した。基礎波は $40 \mu\text{V}$ 前後で 10 Hz の α 波であり、徐波はほとんど認められない。左右差は認めず、閃光刺激や過呼吸賦活にても epileptic discharge は認められず正常脳波と判定した。

入院後経過：入院翌日には、神経学的異常は軽快した。前頭蓋窩発生硬膜動静脈奇形と診断し手術を行った。

手術所見：手術は左前頭開頭により行った。硬膜を翻転すると、左前頭葉表面には上矢状静脈洞に向かう red vein が 1 本認められた。これは拡張蛇行し拍動が著明に認められた (Fig. 5)。表面の red vein を圧迫、損傷しないように左前頭葉を上方に少しずつ retract し前頭蓋底に到達した。嗅窩部硬膜表面から red vein に連なる数本の細い血管を十分に電気凝固し、red vein の色調が黒くなったことを確認した後、これを切断し流出静脈全体を剝離し摘出した。さらに、動静脈奇形が残存せぬように、細い異常血管部を硬膜内より十分に電気凝固した。

Fig. 1 CT scan without contrast enhancement only shows Cavum septi pellucidi et Vergae. It shows no other findings.

Fig. 2 MRI with T1-weighted images by axial view, demonstrate flow-void in the left frontal lobe consistent with dilated pial draining vein (arrow).

病理組織学的所見：硬膜に陥入する形で動脈、静脈の判別のできない管腔が認められた。これらは肥厚、変性した壁を持ち、しかも拡張していた。なお血管腫などを思わせる腫瘍成分は認められなかった。これら所見より硬膜動静

Fig. 3 MRI with T1-weighted images by coronal view, demonstrate flow-void in the left supraorbital area consistent with dilated pial draining vein (arrows).

Fig. 4 Lateral (A) and anteroposterior (B) arteriograms show a Dural AVM fed by the right anterior ethmoidal artery and demonstrate venous drainage into the superior sagittal sinus via cortical vein.

Fig. 5 Operative photograph shows a dilatation of cortical vein (arrowheads) without vascular sac. (F): Frontal lobe (B): skull base.

Fig. 6 Postoperative angiography, revealing disappearance of both the Dural AVM and abnormal draining veins.

脈奇形と判定した。

術後経過：神経学的に異常を認めず，術後の脳血管写においても vascular anomaly は認められず独歩退院した (Fig. 6)。

考 察

硬膜動静脈奇形は，全頭蓋内動静脈奇形のほぼ 10～15% を占める⁸⁾。横静脈洞，海綿静脈洞における発生が多いとされる一方で前頭蓋窩発生のは少なく，Lepoire による報告⁵⁾以来，猟渉し得た報告例は 50 例ほどにすぎない。

前頭蓋窩発生硬膜動静脈奇形の発症年齢は 50～60 歳台がほとんどであり，かつ 80% 以上が男性である。この点に関して横，S 状静脈洞，海綿静脈洞発生例が 40 歳台の女性に多いことと対照的である⁹⁾。臨床症状における特徴

として 80% 以上が出血で発症する点があげられ，全頭蓋内硬膜動静脈奇形の出血が 15% であること⁷⁾と比較して明らかに頻度が高い。硬膜動静脈奇形全体の年間出血頻度は 1.8%/年という¹¹⁾が，出血発症の多い前頭蓋窩発生例はもっと大きな値になろう。出血の risk factor としては，

- 1) petrosal or straight sinus
- 2) venous varices
- 3) cortical venous drainage
- 4) leptomeningeal venous drainage
- 5) aneurysmal venous distension
- 6) Galenic drainage

があげられている¹³⁾が，前頭蓋窩発生例で強調されるものは cortical venous drainage であろう。

一方で頭蓋内出血以外に，前頭葉症状³⁾，耳鳴り，頭

痛⁶⁾、眼球運動障害¹⁾¹³⁾で発症した報告が見られる。また Halbach ら²⁾によれば、流出静脈が後方の海綿静脈洞などに流入する type では眼症状にて発症し得るという。しかし本症例のごとくけいれん発作で発症した報告例は極めてまれで、しかも頭蓋内出血の症状としてのけいれん発作を除き、純粋にけいれん発作のみの症例は Reul ら¹²⁾による1例のみしか渉猟し得なかった。本症例におけるけいれん発作の機序としては、硬膜動静脈奇形の存在により静脈圧が上昇し、前頭葉の venous drainage が障害されたことによる venous congestion が考えられる。Reul ら¹²⁾は、けいれん発症症例4例を報告しているが、うち3例はそれぞれ繰り返す頭痛、めまい、脳内出血を合併した症例であった。また純粋にけいれんのみで発症した1例も、造影CTにて異常血管や前頭葉の浮腫が認められており、脳血管撮影所見においても、流入血管を多数持つような大きな硬膜動静脈奇形であった。本症例のごとくCT所見に乏しくても小さな硬膜動静脈奇形が存在したという事実からは、成人におけるけいれん発作症例への積極的な脳血管撮影検査の必要性が示唆されよう。

硬膜動静脈奇形の発生機序は正常硬膜に存在する micro AV shunts が静脈圧の相対的上昇により臨床症状を呈する血管奇形に発展するものと考えられている。その際の静脈圧上昇の原因として、先天性要因(hypoplasia, aplasia)、手術操作、感染とともに頭部外傷が契機となり発生する可能性のあることも報告されている¹⁰⁾。本症例は、頭部外傷の既往がかなり以前のものであり、これが関連した確証はない。しかし頭部外傷が、micro AV shunts の拡大を促し、加齢に伴う血管の変化が静脈圧を上昇せしめた可能性も否定はできないと思われる。このけいれん発作はただ1回の発作であり、脳波上特異的所見が得られていないが、発作後に一時的に失語を残しており、優位半球由来と考えられた。これは硬膜動静脈奇形存在側であり、他に責任病巣と思われる病変が確認できないことから、今回の発作は前頭蓋窩硬膜動静脈奇形によるものと判断した。

治療に関しては前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は出血の頻度が高いため、手術が第一選択になる。また血管内手術も考慮されるであろうが、ophthalmic artery に catheterization した際に retinal artery の閉塞の危険性がある⁹⁾ことや、導入動脈が多岐にわたる際に効果が期待できないことがあ

る。前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の手術は、cribriform plate の硬膜と arterialized pial vein の間で硬膜動静脈奇形を摘出する。古賀⁴⁾、Malik ら⁷⁾は、完全摘出せずとも cortical drainage を遮断することで十分としているが、完全摘出が望まれよう。またまれではあるが自然消失例も存在するという。

文 献

- 1) Driesen W, Elies W: Über drei Fälle intrakranieller arteriovenöser Mißbildungen mit arterieller Versorgung aus der Arteria ethmoidea anterior. *Neurochirurgia (Stuttg)* **15**: 178-181, 1972
- 2) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB *et al*: Dural arteriovenous fistulas supplied by ethmoid arteries. *Neurosurgery* **26**: 816-823, 1990
- 3) Kikuchi K, Kowada M: Anterior fossa dural arteriovenous malformation supplied by bilateral ethmoidal arteries. *Surg Neurol* **41**: 56-64, 1994
- 4) 古賀寿男, 藤井清孝, 桃崎宣明, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の1例. *神経外科* **27**: 144-149, 1987
- 5) Lepoivre J, Montaut J, Bouchot M, *et al*: Aneurismes arterio-veineux intrafrontaux vascularisés par l'artère ethmoïdale antérieure: A propos de trois observations. *Neurochirurgie* **9**: 159-166, 1963
- 6) Martin NA, King WA, Wilson CB, *et al*: Management of dural arteriovenous malformation of the anterior cranial fossa. *J Neurosurg* **72**: 692-697, 1990
- 7) Malik GM, Pearce JE, Ausman JI, *et al*: Dural arteriovenous malformations and intracranial hemorrhage. *Neurosurgery* **15**: 332-339, 1984
- 8) Newton TH, Cronqvist S: Involvement of dural arteries in intracranial arteriovenous malformations. *Radiology* **93**: 1071-1078, 1969
- 9) 岡田達也, 松田昌之, 半田譲二: 脳動脈瘤と前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の合併. *脳神経外科* **16**: 903-906, 1988
- 10) Picard L, Bracard S, Moret J, *et al*: Spontaneous dural arteriovenous fistula. *Semin Intervent Radiol* **4**: 219-241, 1987
- 11) Pradat P, Doyon D, Navarro-Artiles G, *et al*: Aneurysme arterio-veineux sous-dural de la gouttière olfactive. *Neurochirurgie* **14**: 923-930, 1968
- 12) Reul J, Thron A, Laborde G, *et al*: Dural arteriovenous malformations at the base of the anterior cranial fossa: Report of nine cases. *Neuroradiology* **35**: 388-393, 1993
- 13) Robert DB, Dabid OW, Douglas AN: Intracranial dural arteriovenous fistulae: Angiographic predictors of intracranial hemorrhage and clinical outcome in nonsurgical patients. *J Neurosurg* **81**: 531-538, 1994