非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の検討

川口 務, 河野 輝昭, 本間 輝章, 金子 好郎
堤 正則, 堂坂 朗弘, 大井川秀聡, 風川 清*

Non-hemorrhagic Dural Arteriovenous Malformations of the Anterior Cranial Fossa

Tsutomu KAWAGUCHI, M.D., Teruaki KAWANO, M.D., Teruaki HONNMA, M.D.,
Yoshirou KANEKO, M.D., Masanori TSUTSUMI, M.D., Akihiro DOUSAKA, M.D.,
Hidesato OOIGAWA, M.D., and Kiyoshi KAZEKAWA, M.D.*

Department of Neurosurgery, Fukuoka Tokushukai Hospital, and *Department of Neurosurgery,
Fukuoka University School of Medicine, Fukuoka, Japan

Summary: In the dural arteriovenous malformations of the anterior fossa, the incidence of intracranial hemorrhage is high. We studied 4 patients with nonhemorrhagic dural arteriovenous malformations of the anterior cranial fossa.

There were 3 males and 1 female. Two patients presented with frontal headaches and 2 patients were diagnosed incidentally.

Angiograms revealed the dural arteriovenous malformations fed by the anterior ethmoidal, middle meningeal, superficial temporal and anterior cerebral arteries. The draining veins were pial veins of the frontal lobe into the superior sagittal sinus and cavernous sinus. In all patients, angiograms demonstrated neither venous aneurysm nor varix. Operations were performed successfully on 2 patients. We analyzed the clinical features and radiological findings in 17 reported cases and our 4 cases of the nonhemorrhagic dural arteriovenous malformations.

There were 17 males and 4 females ranging in age from 38 to 69 (mean age of 58.5).

Headache was the reason for presentation in 5 cases, ocular symptoms in 6, seizure in 1, and tinnitus in 1. Eight cases were diagnosed incidentally. Angiographically, 6 cases had venous aneurysms or varix. This frequency was extremely low compared with hemorrhagic dural arteriovenous malformations of the anterior fossa. These findings indicated that a patient with dural arteriovenous malformations associated with a venous aneurysm has an increased risk of hemorrhage.

Venous aneurysm should be treated aggressively.

With a venous aneurysm, aggressive treatment should be done.

Key words:

- dural arteriovenous malformation
- anterior cranial fossa

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 27: 24-30, 1999

はじめに

前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は、1963年 Lepoireらにより報

告され⁸⁾, 硬膜動静脈奇形の約6%を占める⁷⁾. 中年男性に多く, 80%以上が頭蓋内出血で発症するなどの特徴を有す. 今回われわれは, 非出血性の前頭蓋窩硬膜動静脈奇

福岡徳洲会病院 脳神経外科(受稿日 1998.7.6) [連絡先: 〒816-0861 福岡県春日市須玖北4-5 福岡徳洲会病院 脳神経外科 川口務] [Mailing address: Tsutomu KAWAGUCHI, M.D., Department of Neurosurgery, Fukuoka Tokushukai Hospital, 4-5, Sukukita, Kasuga, Fukuoka 816-0861, Japan]

Table 1 Clinical summary of 4 cases with anterior cranial fossa non-hemorrhagic DAVMs

Case	Age/Sex	Clinical presentation	Side	Feeding vessels	Draining veins	VA	Surgery	Outcome
1	55/M	Frontal headache	Rt	BAEA	CS, SSS	no	yes	GR
2	67/M	Incidental (BI)	Lt	BAEA	CS, SSS	no	yes	GR
3	60/M	Frontal headache	Lt	Rt AEA, ACA, Lt STA, MMA	CS, SSS	no	no	
4	58/F	Incidental (ICH)	Rt	Rt AEA	SSS	no	no	

BI: Brain Infarction, ICH: Intracerebral Hemorrhage, BAEA: Bilateral Anterior Ethmoidal Artery, AEA: Anterior Ethmoidal Artery, ACA: Anterior Cerebral Artery, STA: Superficial Temporal Artery, MMA: Middle Meningeal Artery, CS: Cavernous Sinus, SSS: Superior Sagittal Sinus, VA: Venous Aneurysm, DAVMs: Dural Arteriovenous Malformations, GR: Good Recovery

Fig. 1 A: T1-weighted axial imaging revealing the flow void (arrow) at the right frontal region. B: ^{123}I -HMP SPECT showing no abnormal perfusion area in the frontal region. C: 3D-CT angiography showing an abnormal vessel (arrowhead).

A | B | C

形4症例を経験したので報告し、渉猟しえた非出血性の前頭蓋窩硬膜動静脈奇形17症例を加え検討する。

対 象

4症例をTable 1に呈示する。年齢は55, 67, 60, 58歳と中高年で、男性3例女性1例で、非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形である。発見の契機は、頭痛の精査にて施行したMRI, 3D-CTAで発見されたもの2例、脳梗塞、脳出血に施行した脳血管撮影で発見されたもの2例である。4症例中2例で手術を施行した。脳出血で発症した1例は肝硬変を伴っており保存的に加療し、他の1例は手術の同意が得られず経過観察とした。

代表症例

手術を施行した2症例を呈示する。

〈症例1〉55歳男性。

平成8年9月約1ヵ月持続する前頭部を中心とした頭痛

を訴え、当科を受診した。家族歴として、兄が脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血をきたしており、脳血管の精査を希望していた。

神経学的所見：意識は清明で神経脱落症状はなかった。前額部で雑音は聴取されなかった。

神経放射線学的検査：3D-CTAでは右前頭蓋底に1本の拡張した異常血管を認め、MRIで右嗅溝に拡張蛇行した無信号領域が存在した(Fig. 1)。脳血管撮影では両側前篩骨動脈を流入動脈とする右側の前頭蓋窩硬膜動静脈奇形を認めた。静脈瘤は存在せず、右前頭葉底部の拡張蛇行した皮質静脈を経て、海綿静脈洞に流出し、一部は上矢状洞に流出していた(Fig. 2)。しかし、その周囲に静脈うっ滞などは認められなかった。 ^{123}I -IMP-SPECTでは前頭葉の血流低下もなく、その他の脳血流量の異常もなかった(Fig. 1)。

手術：両側前頭開頭術を行い、硬膜を切開翻転し、鶏冠に到達した。右側篩板には前篩骨動脈からの異常血管を

Fig. 2 Right internal carotid angiograms demonstrating dural arteriovenous fistula at the anterior cranial fossa fed by the anterior ethmoidal artery. The venous aneurysm was not seen.

A | B

Fig. 3 Operative photograph demonstrating dural arteriovenous fistula at the right cribriform plate and an enlarged red vein (arrowhead).

認め、これは右側の赤色静脈に連なっていた(**Fig. 3**)。大部分は前頭蓋底の拡張した皮質静脈を経て海綿静脈洞方向へ、一部は右前頭葉脳表静脈を経て上矢状洞へ流出していた。篩板で異常血管を bipolar で凝固し切断した。篩板付近の硬膜にドップラーをあて、動静脈瘻の離断が十分であることを確認した。なお、右嗅神経の温存はできなかった。

右側の無嗅症は残存したが、患者の自覚はなく、術後経過は良好で他の神経脱落症状はなく独歩退院した。また術後脳血管撮影では前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は消失した(**Fig. 4**)。

〈症例2〉67歳男性。

平成9年4月18日軽度の右上下肢の脱力を訴え、翌日

Fig. 4 Right internal carotid angiograms revealing the disappearance of the dural arteriovenous fistula.

A | B

Fig. 5 A: T2-weighted imaging showing flow void (arrow) at the left frontal region.
B: ^{123}I -IMP SPECT revealing no low perfusion area in the left frontal region.

A | B

当科を受診した。

神経学的所見：意識は清明で軽度の右不全片麻痺を認めた。前額部で雑音は、聴取されなかった。

神経放射線学的所見：MRIT2強調画像では、左基底核に小さな高信号域を認め脳梗塞と診断した。この病変とは別に左前頭蓋底に屈曲蛇行する無信号域を認めた(Fig. 5)。脳血管撮影では、左内頸動脈分岐部に70%の狭窄を認めた。さらに左側優位で両側前篩骨動脈を流入血管とする前頭蓋窩硬膜動静脈奇形を認めた。流出血管は、左前頭葉底部の拡張蛇行した皮質静脈で、これは左海綿静脈洞へ、一部は上矢状洞に流出していた(Fig. 6)。静脈瘤は存在せず、また静脈うっ血も存在しなかった。左頸動脈狭窄症に対しては、5月8日内膜剥離術を行った。その後、リハビリを行い右不全片麻痺は完全に改善した。6月6日の ^{123}I -IMP-SPECTでは、前頭部の血流低下もなく、他の部位においても脳血流量の低下は認められなかった(Fig. 5)。

手術：6月12日前頭蓋窩硬膜動静脈奇形に対し手術を施行した。両側前頭開頭を行い左側の嗅神経の外側に異常血管を認め、これは赤色静脈に連なっていた(Fig. 7)。この異常血管を凝固し切断した。結局、左嗅神経は離断された。篩板付近の硬膜にドップラーをあてると、わずかに動静脈瘻の残存があり、さらに凝固を行った。

術後の血管撮影では前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は完全に消失しており、またMRIで無信号領域は消失し、3D-CTAでも異常血管は消失した(Fig. 8)。左の無嗅症のみ残存し他の神経脱落症状なく独歩退院した。

考 案

硬膜動静脈奇形は存在部位により、異なった臨床上の特

Fig. 6 Left common carotid angiograms showing dural arteriovenous fistula of the anterior cranial fossa by the anterior ethmoidal artery. The venous aneurysm was not demonstrated.

徴を有している。King, Martinらは、前頭蓋窩硬膜動静脈奇形について自験9例を含め26例を分析し報告している⁷⁾。それによると男性77%、女性23%と圧倒的に男性に多く、40代19%、50代46%、60代35%で平均年齢55歳で中高年で発症している。出血発症は21例81%にのぼり、非出血症例は眼球突出2例、頭痛1例、耳鳴り1例、後頭葉の脳内出血に合併した偶発1例である。

硬膜動静脈奇形の自然歴は、いまだ解明されていないが、Awadらは、危険な硬膜動静脈奇形として、皮質静脈への

Fig. 7 Operative photograph showing dural arteriovenous fistula at the left cribriform plate and enlarged red veins (arrowhead).

流出、静脈瘤の存在、ガレン静脈への流出をあげている²⁾。前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は、横静脈洞-S状静脈洞や海綿静脈洞などの硬膜動静脈奇形と比較し、出血をきたしやすいとされている。その原因は前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は、他の部位の硬膜動静脈奇形と異なり、静脈洞の近傍に存在するのではなく、常に流出血管として皮質静脈への流出が存在しており、脳動静脈奇形の出血率に類似するのではないかと考えられている⁷⁾。さらに重要な要因としてあげられるのが静脈瘤の存在で、静脈瘤から出血したとする報告が多数みられる⁷⁾。

Table 2 に渉猟しえた血管撮影所見が詳述された非出血

Table 2 Clinical summary and radiographic features of patients with non-hemorrhagic DAVMs of anterior cranial fossa

Sex	Male	17 (81%)
	Female	4 (19%)
Age	30-39	1 (5%)
	40-49	0
	50-59	9 (43%)
	60-69	11 (52%)
Clinical Presentation		
	Headache	5
	Visual loss, Amaurosis Fugax	3
	Exophthalmos	2
	Seizure	1
	Tinnitus	1
	Trochlear nerve palsy	1
	Incidental	8
	(SAH: 1, ICH: 3, BI: 2, CCF: 1)	
Feeding Artery		
	Anterior ethmoidal artery	21
	Internal maxillary artery	5
	Superior temporal artery	4
	Middle meningeal artery	3
	Anterior cerebral artery	2
Venous Drainage		
	Superior sagittal sinus	18
	Cavernous sinus	6
	Basal vein	4
Venous aneurysm		6 (28.6%)

Fig. 8 A: T2-weighted imaging demonstrating the disappearance of the flow void at the left frontal region.

B: 3D-CT angiography showing no abnormal vessel.

A | B

性の前頭蓋窩硬膜動静脈奇形17症例に自験4例を加えた21症例の非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の要約を示す³⁾⁻⁵⁾⁹⁾⁻¹⁵⁾。男性17例女性4例、年齢は38-69歳(平均58.5歳)であった。発見された理由および症状として、脳内出血、くも膜下出血、脳梗塞、頸動脈海綿静脈洞瘻に施行された血管撮影で発見された偶発例8例、頭痛5例、けいれん1例、耳鳴り1例、眼症状6例である。流入血管は、前篩骨動脈は21例全例、上顎動脈5例、浅側頭動脈4例、中硬膜動脈3例、前大脳動脈2例である。流出血管は上矢状洞18例、海綿静脈洞6例、脳底静脈4例であった。また本報告を含めた21症例の非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形においては、静脈瘤は、6例28.6%に認められた。これは、前述のKing, Martinらの報告⁷⁾と比較するときわめて低率である。この結果からも、出血の原因として静脈瘤の存在が重要な要因の一つと考えられる。本疾患において、流出血管の皮質静脈が動脈圧により拡張蛇行し、さらに屈曲部などにhemodynamic stressが加わり、静脈瘤が生じ、これが出血するのではないかと推定される。よって、皮質静脈を常に流出血管として有す前頭蓋窩硬膜動静脈奇形は、危険なもので治療すべきであり、静脈瘤を伴ったものは、さらに出血しやすい状態と考えられ、より積極的な治療が必要と考えられる。したがって、本報告の4例でも静脈瘤は存在しなかったが、流出静脈の拡張蛇行が認められたため、全例手術適応があると考えられた。また本報告を含めた文献例21症例の非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形においては、本報告例2例を含め13例が開頭術による治療が施行され、その中で4例が静脈瘤を伴っていた。

硬膜動静脈奇形には、静脈洞閉塞あるいは静脈性高血圧のため頭蓋内に静脈うっ滞を生じ出血をきたしたり、痴呆や神経脱落症状をきたすことがしばしば報告されている²⁾。本疾患では、流出血管が上矢状洞や海綿静脈洞であることが多く、これらの静脈洞の圧が上昇し、頭蓋内に静脈のうっ滞をきたす病態も予想されうるが、このような報告は渉猟しえた範囲では皆無である。本報告では、2例で¹²³I-IMP-SPECTを施行したが、前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の存在部位近傍や他の部位の脳血流量低下は認められなかった。この理由として、本疾患では横静脈洞S状静脈洞の硬膜動静脈奇形などとは異なり、静脈洞の閉塞や狭窄が関与せず、またこの2症例では、シャント量が少なく、動脈血が流出血管である皮質静脈、静脈洞に流入しても静脈うっ滞を生じるまでの静脈性高血圧をきたさなかったのではないかと考えられる。

非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形21症例中6例に眼症状がみられている。3例は視力低下⁵⁾・黒内障¹⁴⁾、2例は眼球突出⁴⁾、1例¹⁵⁾は滑車神経麻痺である。Halbachらは、視力低下にて発症した前頭蓋窩硬膜動静脈奇形に対して手

術を施行し、その改善を認めた2症例を報告している。彼らは視力低下の機序として、眼動脈から前頭蓋窩硬膜動静脈奇形への盗血による症状、あるいは、海綿静脈洞に流出していたことから上眼静脈の圧が上昇し、この部位で静脈うっ滞をきたし視力障害を生じたのではないかと考察している⁵⁾。

MRIや3D-CTAで本疾患を診断することは比較的容易であり、脳ドックなどで非出血性の前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の診断も可能である。今後、非出血性前頭蓋窩硬膜動静脈奇形の症例が蓄積され、どのようなものが出血しやすいのか、また頭蓋内に静脈うっ血、静脈性脳虚血をきたすような病態は存在しないのかなど、さらなる解明が期待される。

治療には、開頭術、血管内外科による治療、放射線療法などがある。開頭術では、前頭蓋窩硬膜動静脈奇形を含む硬膜と流出静脈の離断により治療される。静脈瘤は、この手技により血栓化縮小し、摘出の必要はないと報告されており⁷⁾、本報告でも同様であった。われわれの症例では、離断後、ドップラーを篩板付近の硬膜にあてると、わずかに動静脈瘻の残存が認められ、本手術に有効であった。開頭術による治療にも、嗅神経の温存が困難な点や術後の髄液漏などの問題もあるが、現時点では、手術が治療の第一選択と考えられる。

本疾患に対する血管内外科による塞栓術は、これまで数例報告されているが¹⁾⁶⁾¹⁵⁾、眼動脈閉塞など危険性もあり、現時点では治療の第一選択とすべきではないとされている⁵⁾⁹⁾。今後、技術の進歩、塞栓物質などの改良により治療方法の一つとなることが期待される。また放射線治療に関しては、硬膜動静脈奇形の血栓化が得られるまで1-2年を必要とし、出血例では推奨されない⁷⁾。開頭術による治療が安全で有効な方法ではあるが、本報告のごとく、非出血例で、静脈瘤を伴っていない症例や眼症状を伴っていない症例では、放射線治療も治療方法の一つと考えられる。

文 献

- 1) 笠谷武雄, 上山博康, 阿部 弘, ほか: 特異な draining vein を有した前頭蓋底部硬膜動静脈奇形の一例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **27**: 1195-1200, 1987
- 2) Awad IA, Little JR, Akrawi WP, *et al*: Intracranial dural arteriovenous malformations: factors predisposing to an aggressive neurological course. *J Neurosurg* **72**: 839-850, 1990
- 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) Driesen W, Elies W: Über drei Fälle intrakranieller arteriovenöser Mi bildungen mit arterieller Versorgung aus der Arteria ethmoidea anterior. *Neurochirurgia (Stuttg)* **15**: 178-181, 1971

- 5) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, *et al*: Dural arteriovenous fistulas supplied by ethmoidal arteries. *Neurosurgery* **26**: 816-823, 1990
- 6) 早瀬一幸, 鈴木知毅, 下道正幸, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静脈シャントに対するコイル塞栓術. 第10回日本脳神経血管内手術研究会講演集, 新潟, 1994
- 7) King WA, Marin NA: Dural arteriovenous malformations. AANS Publications Committee, Park Ridge, 1993, pp 105-116
- 8) Lepoivre J, Montaut J, Bouchot M, *et al*: Aneurismes arterio-veineux intrafrontaux vascularises par l'artere ethmoidale anterieure. A propos de trois observations. *Neurochirurgie* **9**: 159-166, 1963
- 9) Marin NA, King WA, Spetzler RF, *et al*: Management of dural arteriovenous malformations of the anterior cranial fossa. *J Neurosurg* **72**: 692-697, 1990
- 10) 松原年生, 和賀志郎, 小島 精, ほか: 前頭蓋窩硬膜動静脈奇形. 脳卒中の外科 **18**: 103-108, 1990
- 11) 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
- 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) Tanaka K, Yonekawa Y, Miyake H: Dural arteriovenous malformation in the anterior cranial fossa: report of a case. *Surg Neurol* **36**: 221-225, 1991
- 14) Xiong L, Li J, Jinkins JR: Amaurosis fugax caused by a dural arteriovenous fistula from the ophthalmic artery. *AJNR* **14**: 191-192, 1993
- 15) 山本正昭, 福島武雄, 坂元政三郎, ほか: 滑車神経単独麻痺で発症した前頭蓋底 Mixed Dural-pial Arteriovenous Malformation の1例. 脳神経外科 **21**: 177-181, 1993