

後頭蓋窩に動静脈奇形と脳動脈瘤を合併した一例

高知医科大学脳神経外科（主任：森 惟明教授）

清家 真人，森 惟明，織田 祥史，内田 泰史，村田 高穂
森本 雅徳，奥村 禎三，上村 賀彦，有澤 雅彦

〔原稿受付：昭和58年3月7日〕

A case of the Arteriovenous Malformation Associated with the Intracranial Aneurysm in the Posterior Fossa

MASATO SEIKE, KOREAKI MORI, YOSHIFUMI ODA, YASUFUMI UCHIDA,
TAKAHO MURATA, MASANORI MORIMOTO, TEIZO OKUMURA,
YOSHIHIKO KAMIMURA and MASAHIKO ARISAWA

(Director: Prof. Dr. KOREAKI MORI)

The arteriovenous malformation associated with intracranial aneurysm is an uncommon condition (1.4%–9.3% of all intracranial arteriovenous malformations). Especially, the association of both lesions in the posterior fossa is rare (about 1% of all intracranial arteriovenous malformations).

The change of the hemodynamics is seemed to play an important role in the association of these two lesions. Consequently, we should consider the change of the hemodynamics at the planning of operation.

はじめに

脳動静脈奇形に合併した脳動脈瘤は現在までいくつか報告されており、その頻度は頭蓋内動静脈奇形の1.4~9.3%といわれている。更に後頭蓋窩のものは、合併例中10.8~25%といわれており、全頭蓋内動静脈奇形中の約1%と考えられ、かなり稀なものと思われる。

両者の合併については、脳動静脈奇形による血流動態の変化が原因の一つとして重要な役割を果たしており、手術に際しても血流動態に対する考慮が必要となる。

最近、我々は上小脳動脈の動静脈奇形に合併した脳動脈瘤に対し、手術的治療を施行し、良好な経過を得た一例を経験したので、若干の文献的考察を加えて、ここに報告する。

Key words: Arteriovenous malformation, Aneurysm, Posterior fossa, Subarachnoid hemorrhage, Subtemporal approach,

索引語：動静脈奇形，動脈瘤，後頭蓋窩，クモ膜下出血，側頭下到達法。

Present address: Department of Neurosurgery, Kohchi Medical School, Kohasu, Okoh, Nangoku-shi, Kohchiken, 781-51, Japan.

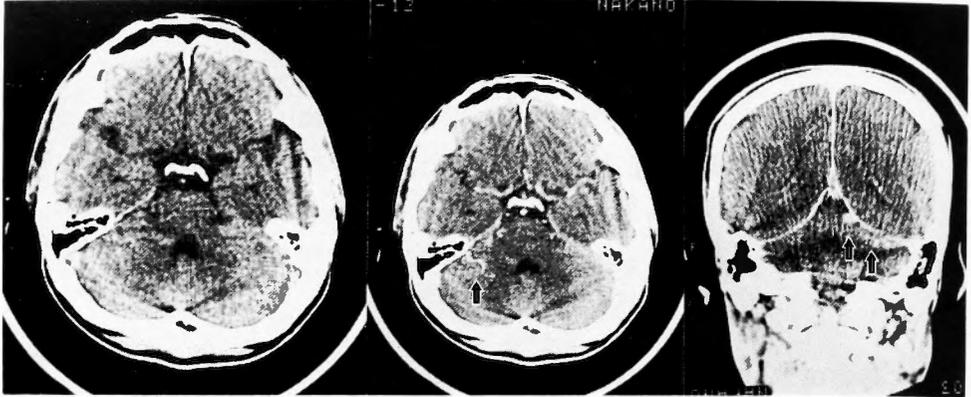


Fig. 1. Pre-operative CT scans
 Left; Plain CT scan
 Center; Contrast Enhancement CT scan showing drainer of AVM (arrow).
 Right; Coronal CT scan showing nidus and drainer of AVM (arrows).

症 例

患者：39才 右利きの男性

主訴：突然の頭痛 嘔吐の既往

既往歴 家族歴：特記すべきものなし。

現病歴：昭和55年頃、漁作業中に突然激しい頭痛、嘔吐をきたすも意識清明であり、数日で軽快した。昭和57年5月1日、漁作業中、再び激しい頭痛、嘔吐を

きたす。意識障害はなかった。近医にて末梢血白血球数の増加、及び腰椎穿刺の結果血性髄液を認められ、更に他医にて精査の結果、後頭蓋窩の動静脈奇形と脳動脈瘤を指摘され、手術目的にて6月11日高知医大脳神経外科入院となる。

入院時現症：意識清明で頭痛、嘔吐なく、神経学的にも何ら異常を認めず。

一般検査所見：末梢血像、生化学検査、尿検査所

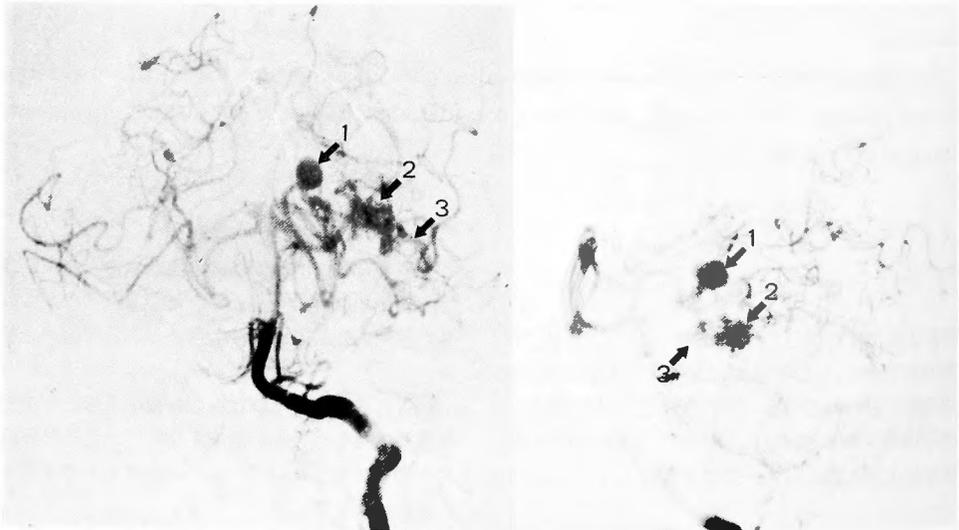


Fig. 2. Pre-operative Vertebral Angiograms
 Left; Antero-posterior view, arterial phase
 Right; Lateral view, arterial phase
 arrow 1; aneurysm
 arrow 2; nidus of AVM
 arrow 3; drainer (superior petrosal vein) of AVM

見には異常認められなかった。

CT scan : Plain CT (Fig. 1 左) では、脳内血腫の存在は認められず、脳室系の拡大も認めなかった。enhanced CT (Fig. 1 中央) では、左小脳半球に異常血管網の描出を認めた。Coronbl CT (Fig. 1 右) では、左テント直下に数珠状に増強される病変を認め、動静脈奇形が左テント直下の左小脳半球表層に存在することを示している。

脳血管撮影：左椎骨動脈撮影像を Fig. 2 に示した。動脈相にて、左上小脳動脈の quadrigeminal segment から upper vermian branch の部に 7mm×5mm×5mm の嚢状動脈瘤を認める。ドームは後上方に向かって突出しており、一部に bleb を認める。更に、その末梢側、後下方に動静脈奇形を認める。動静脈奇形の main feeder は左上小脳動脈であり、drainer は左上錐体静脈で、動脈相において、すでにその描出を認め、著明な拡大を示している。

手術：昭和57年6月24日、動脈瘤、動静脈奇形の両者に対し、左側頭開頭にて one stage で手術施行した。術前よりステロイド投与し、更に spinal drainage を留置しておき、開頭時にこれを開放した。術中も dehydrator を十分に使用、hyperventilation も併用して、極力、側頭葉の volume 減少につとめた。体位も、頭側をやや挙上した右側臥位とし、頭頂側をやや低くし

て頭蓋底と側頭葉の間隙が充分となるようにした。Subtemporal approach にて病変部へ到達した。CT 上、特に脳内血腫は認めなかったが、血管撮影上、動脈瘤に bleb を認め、動脈瘤が出血源としての可能性が高く、また、動静脈奇形の近位側に動脈瘤が存在することから、まず動脈瘤に対する処置を先行させた。尚、この際 Labbe 静脈は切断せず温存した。動脈瘤は周囲との癒着が高度であったが、剥離した後、その頸部に clipping を行った。更に、その末梢側の小脳表面に動静脈奇形を認め、これに対しては、その流入血管を電気凝固した後摘出し、手術を終了した。

術後経過：術後4日間、不穏状態となるも次第に改善した。術後9日目より、失読、複視を訴えたが、これも徐々に改善し、術後4ヶ月後には全く消失した。失読は左側頭葉を圧排したためにおこった一時的な症状と思われ、複視は動脈瘤に近接して滑車神経が走行しており、術中操作により加えられた損傷によるものと思われる。

術後の血管撮影 (Fig. 3) で、動脈瘤、動静脈奇形の描出されないことを確認した。

考 察

脳動脈瘤を合併した脳動静脈奇形に関する報告は、現在までにいくつかなされているが、Table 1^{1),6),9),15)}

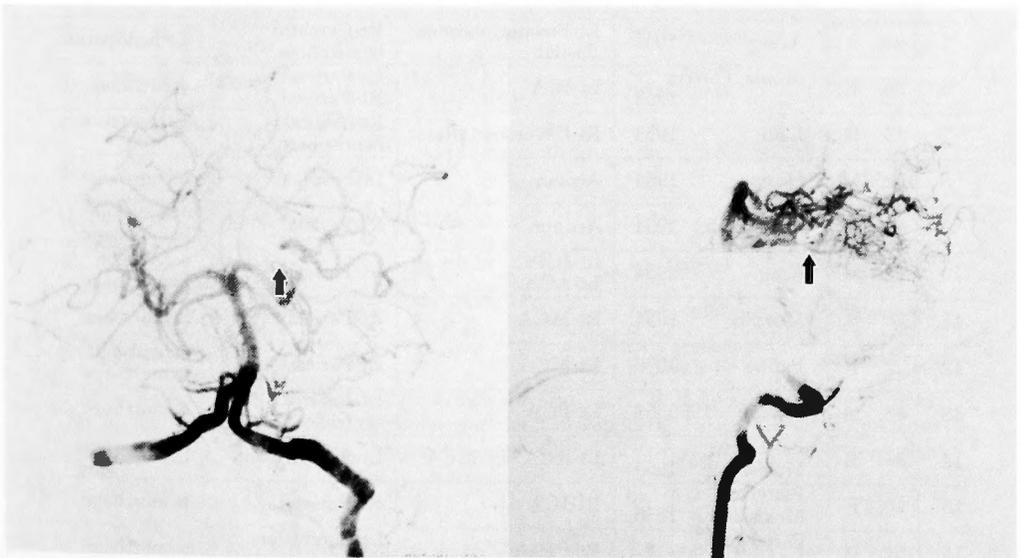


Fig. 3. Post-operative Vertebral Angiograms
Left; Antero-posterior view, arterial phase
Right; Lateral view, arterial phase
arrow; clip of the aneurysmal neck

Table 1. 脳動静脈奇形に合併した脳動脈瘤の頻度

報告者	年	症例数	合併例	頻度 (%)
Paterson, J.H. McKissock, W.	1956	110	3	2.7
Anderson, R.McD. Blackwood, W.*	1959	9	5	55.6
Gurdjian, F.S.	1965	38	3	7.9
McCormik, W.F. Nofzinger, J.D.	1965	100	6	6.0
Perret, G. Nishioka, H.	1966	510	37	7.3
Cronqvist, S. Trouppe, H.	1966	150	13	8.3
Waltino, O.	1972	58	4	7.0
Tsuchida, H. Miyazaki, Y.	1975	73	1	1.4
Suzuki, J. Onuma.	1979	140	9	6.4
Higashi, K.	1979	43	4	9.3

* 剖検例

¹⁸⁾に示すように、その頻度は1.4~9.3%といわれている。また、後頭蓋窩に動脈瘤と動静脈奇形の両者が存在するものは、Perret, Nishika の cooperative study¹⁵⁾での合併例37例中4例(10.8%) Suzuki¹⁸⁾らの9例中1例(11.1%) Higashi¹⁸⁾らの4例中1例(25%) Paterson, McKissock¹⁴⁾らの3例中1例(33.3%)であり、全頭蓋内動静脈奇形中、およそ1%程度と考えられる。

局在、発症様式の比較的明確な43例に、我々の1例を加えた44例 (Table 2) について検討すると、後頭蓋窩に両者が存在するものは4例^(8,14,18)であり(9.1%)、そのうち3例が後下小脳動脈領域に動脈瘤が存在し、我々の一例のみが上小脳動脈領域の動脈瘤であった。また、動静脈奇形と同側に動脈瘤を合併するものが3例、対側のものが1例であった。また、天幕上も含めて両者が同側に存在したものは29例(70.7%)であり、更に、同一主幹動脈領域(たとえば右中大脳動脈と右

Table 2. 動脈瘤—動静脈奇形の局在及び発症様式

	症例	報告者・年	動脈瘤の局在	動静脈奇形の局在	発症様式
1	51. F	Laves 1925	Rt-MCA	Rt-Parietal	convulsion hemorrhage
2	52. F	Stewart, Ashby 1930, 31	Lt-ACA, Rt-ICA Basilar	Lt-Parietal	convulsion
3	50. ?	Walsk, King 1942	Rt-Supraclinoid	Lt-Occipital	hemorrhage
4	59. M	Arieti, Gray 1944	Lt-Supraclinoid	Lt-Parietal	convulsion
5	30. F	Aring 1945	Lt-Pcomm, Acomm Basilar	Rt-Cerebral hemisphere	Lt-hemiparesis
6	33. F	Moniz, Guerra 1953	Lt-ICA	Lt-Parietal Rt-Parietal	convulsion
7	15. M	Laur 1953	Rt-Cavernous sinus	Lt-Cerebral hemisphere	Rt-proptosis bruit
8	62. M	Hutton 1954	Acomm	Lt-Frontal	hemorrhage
9	55. M	Kane, Foley 1954	Acomm	Rt-Parietal	convulsion hemorrhage
10	22. M	King 1954	Lt-ICPC Lt-ACA	Rt-Parietal	convulsion hemorrhage
11	? ?	Murphy 1954	Rt-MCA	Rt-Parietal	hemorrhage
12	22. F	Paillas 1956	Lt-MCA	Lt-Parietal	convulsion hemorrhage
13	48. M	Walton 1956, 58	Lt-PCA	Rt-Lateral ventricle	hemorrhage
14	36. M	Patterson Mckissock 1955	Lt-ACA, Lt-MCA	Lt-Sylvian point	hemorrhage
15	40. F	Patterson Mckissock 1956	Rt-ICA	Rt-Parietal	hemorrhage
16	54. M	Patterson Mckissock 1956	Rt-PICA	Lt-Cerebellar hemisphere	hemorrhage
17	48. F	Anderson Blackwood 1959	Rt-ICPC, Acomm Basilar	Rt-Parietal	hemorrhage
18	54. F	Anderson Blackwood 1959	Lt-MCA, Lt-ACA Lt-PCA, Lt-ICA	Lt-Parietal	convulsion hemiplegia

	症 例	報 告 者・年	動脈瘤の局在	動静脈奇形の局在	発 症 様 式
19	53. M	Anderson Blackwood 1959	Lt-ICPC Basilar	Rt-Parietal	convulsion hemorrhage
20	52. F	Anderson Blackwood 1959	Acomm, Rt-MCA	Rt-Parietal	hemorrhage
21	47. M	Anderson Blackwood 1959	Acomm	Rt-Parietal	convulsion hemiplegia
22	27. F	Christensen Larsen 1959	Lt-Parietal (血管不明)	Lt-Parietal	?
23	38. F	Boyd-Wilson 1959	Rt-ACA	Lt-Occipital	hemorrhage
24	49. M	Boyd-Wilson 1959	Rt-ACA	Rt-Frontal	hemorrhage
25	49. M	Boyd-Wilson 1959	Rt-ICPC	Rt-Parietal	hemiparesis
26	34. M	Caram Sharkey 1960	Rt-anterior choroidal artery	Rt-Lateral ventricle	hemorrhage
27	74. M	H.A. Shenkin 1971	Rt-ICA	Rt-Parietal	hemorrhage
28	8. F	Tsuchida Miyazaki 1975	Lt-MCA	Lt-Parietal	hemorrhage
29	39. M	Suzuki Onuma 1979	Rt-ACA	Rt-Parieto- occipital	convulsion
30	47. F	Suzuki Onuma 1979	Rt-ICPC	Rt-Frontal	hemorrhage
31	34. F	Suzuki Onuma 1979	Lt-MCA	Lt-Para- ventricular	hemorrhage hemiparesis
32	52. F	Suzuki Onuma 1979	Lt-ICPC	3rd-ventricle	hemorrhage
33	38. M	Suzuki Onuma 1979	Lt-ICA	Lt-Parieto- temporal	convulsion
34	50. F	Suzuki Onuma 1979	Lt-PICA	Lt-Cerebellar hemisphere	hemorrhage
35	21. F	Suzuki Onuma 1979	Rt-ACA	Rt-Frontal	hemorrhage hemiparesis
36	33. M	Suzuki Onuma 1979	Rt-ACA	Rt-deep parietal	convulsion hemorrhage
37	51. M	Suzuki Onuma 1979	Rt-ICPC	Rt-Temporal	hemiparesis hemorrhage
38	38. M	Higashi 1979	Lt-PICA	Lt-Cerebellar hemisphere	hemorrhage
39	? ?	Higashi 1979	ACA	?	?
40	? ?	Higashi 1979	MCA	?	?
41	? ?	Higashi 1979	PCA	?	?
42	40. F	Koulouris 1981	Rt-PICA	Rt-Parietal	hemiparesis
43	47. M	Kamazuka 1982	Lt-MCA, Lt-ACA Lt-ICA	Lt-Frontal	hemorrhage
44	39. M	Seike 1983	Lt-SCA	Lt-Cerebellar hemisphere	hemorrhage

ACA: anterior cerebral artery, MCA: middle cerebral artery, PCA: posterior cerebral artery, ICA: internal carotid artery, Acomm: anterior communicating artery, Pcomm: posterior communicating artery, PICA: posterior inferior cerebellar artery, SCA: superior cerebellar artery

頭頂葉)に存在すると考えられるものは27例(65.9%)であった。こうした同一主幹動脈領域に両者が合併する原因としては、①動静脈奇形による血流増加が動脈瘤を発生させるとする Paterson, McKissock の説¹⁰⁾、

②両者とも多発先天奇形の一つであるとする Anderson, Blackwood の説¹¹⁾ ③全くの偶然であるとする Boyd-Wilson の説³⁾ があるが、現在のところ2前者を複合した、先天的欠陥のある血管壁に動静脈奇形によ

る血流増加というストレスが付加されて動脈瘤を生ずる、という説が有力である。

発症様式としては、記載のある40例のうち頭蓋内出血(クモ膜下出血及び脳内出血)の様式を呈したものが29例(72.5%) けいれん13例(32.5%) 片麻痺8例(20%)であった(重複例を含む)。後頭蓋窩に両者の存在したものは全例クモ膜下出血による発症であり、その出血源は全て動脈瘤であった。

手術的治療の有無及び術後経過について検討してみると、比較的詳細な記載のあったものは31例(Table 3)であった。動脈瘤に対してのみ処置の行なわれたものは4例^{4,15,18)}であり、うち2例は死亡、1例に神経症状の悪化をみている。動静脈奇形に対してのみ処置の行なわれたものは10例^{1,7,15,16)}で、うち3例は死亡、2例に神経症状の悪化をみている。これに対し、両者に対して何らかの処置の行なわれたものは17例^{8,9,10,15,18)}で、1例が死亡しているものの、16例(94.1%)で神経症状の改善を認めている。このように、いずれか一

方の処置にとどまったものは14例中5例(35.7%)に死亡、3例(21.4%)に神経症状の悪化をみえており、57.1%が予後不良であった。これは前述したように、両者が血流動態の変化を基盤として合併することが多いという説に合致するもので、いずれか一方に対する処置によって他方への血流動態が変化した結果、その破綻をきたすものと考えられる。Nornes¹⁹⁾らは、動静脈奇形の流入血管を閉塞することにより、その近位の動脈圧が平均50%上昇すると報告している。これらを考慮すると、両者の合併例に対する手術はできる限り one stage で行うべきであり、しかも、近位側のもの(その多くは動脈瘤)に対する処置を優先すべきであると考える。

む す び

以上、後頭蓋窩の同一動脈領域に発生した脳動脈瘤と脳動静脈奇形の一例を経験したので、過去の文献的考察も含めて、ここに報告した。

Table 3 動脈瘤及び動静脈奇形に対する手術法

1) 動脈瘤に対する処置のみ

報告者・年	動脈瘤への処置	動静脈奇形への処置	術後経過
Perret, Nishioka 1956	internal carotid ligation	none	death
	intracranial trapping	none	poor
Caram 1960	clipping	none	death
Suzuki 1979	clipping	none	good

2) 動静脈奇形に対する処置のみ

報告者・年	動脈瘤への処置	動静脈奇形への処置	術後経過
Perret, Nishioka 1956	none	resection	death
	none	resection	good
	none	resection	good
	none	resection	good
	none	clipping of feeders	poor
	none	resection	unknown
Anderson Blackwood, 1959	none	partial excision	death
	none	partial excision	death
Shenkin 1971	none	resection	good
Kamazuka 1982	none	resection	poor

3) 両者に対する処置

報告者・年	動脈瘤への処置	動静脈奇形への処置	術後経過
Perret, Nishioka 1956	wrapping	resection	death
	resection	resection	good
	clipping	resection	good
	clipping	resection	good
	clipping	clipping of feeders	good
Tsuchida 1975	resection	resection	good
Suzuki 1979	ligation	resection	good
	clipping	resection	good
	clipping	resection	good
	clipping	resection	good
	resection	resection	good
	ligation	resection	good
	clipping	resection	good
	ligation	resection	good
Higashi 1979	clipping	resection	good
Koulouris 1981	clipping	resection	good
Seike 1983	clipping	resection	good

good ; 術後神経症状の改善をみたもの。
 poor ; 術後神経症状の増悪をみたもの。
 death ; 死亡。

文 献

- Anderson RM, Blackwood W: The association of arteriovenous angioma and saccular aneurysm of the arteries of the brain. *J Pathol* **77**: 101-110, 1959.
- Arieti S, Gray EW: Progressive multiform angiomas. Association of a cerebral angiomas, aneurysms and other vascular change in the brain. *Arch Neurol Psychiatry* **51**: 182-189, 1944.
- Boyd-Wilson JS: The association of cerebral angiomas with intracranial aneurysms. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* **22**: 218-223, 1958.
- Caram PC, Sharkey PC: Thalamic angioma and aneurysm of the anterior choroidal artery with intraventricular hematoma. *J Neurosurg* **17**: 347-352, 1960.
- Christensen E, Larsen H: Fatal subarachnoid hemorrhages in pregnant women with intracranial and intramedullary vascular malformations. *Acta Psychiatr Neurol Scand* **28**: 441-451, 1959.
- Cronqvist S, Troupp H: Intracranial arteriovenous malformation and arterial aneurysm in the same patient. *Acta Neurol Scand* 307-316, 1966.
- Kamazuka F, Chishiki T, Sugiura K: An arteriovenous malformation associated with three aneurysms. (Case report; Concerning priority in surgical procedure. *Neurol Med Chir* **22**: 468-472, 1982.
- Higashi K, Hatano M, Yamashita T, Inoue S, Matsumura T: Coexistence of posterior inferior cerebellar artery aneurysm and arteriovenous malformation fed by the same artery. *Surg Neurol* **12**: 405-408, 1979.
- 土田博美, 宮崎雄二: 同一動脈, 同一領域に脳動脈瘤と脳静脈奇形が存在した一例. *脳神経外科* **4**: 997-1003, 1976.
- Koulouris S, Rizzoli HV: Coexisting intracranial aneurysm and arteriovenous malformation; Case report. *Neurosurg* **8**: 219-222, 1981.

- 11) Laur A: Cerebrales Risenangiom mit Anomalie der grossen Arterien und multiplen sackfoermigen Aneurysmen. *Dtsch Arch Klin Med* **200**: 236-249, 1953.
- 12) Laves W: Ein Fall von Angioma arteiale reserosum des Gehirnes im Bereiche der rechten Art. cerebri media, nebst einem Beitrag zur Frage der Entwicklung von Rankenangiomen im Gehirn. *Jahrb Psychiat Neurol* **44**: 55-76, 1925.
- 13) Nornes H, Grip A: Hemodynamic aspects of cerebral arteriovenous malformation. *J Neurosurg* **53**: 456-464, 1980.
- 14) Paterson JH, Mokissock W: A clinical survey of intracranial angiomas with special reference to their mode of progression and surgical treatment. A report of 110 cases. *Brain* **79**: 233-266, 1956.
- 15) Perret G, Nishioka H: Report on the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhages, section VI arteriovenous malformation. An analysis of 545 cases of craniocerebral arteriovenous malformations and fistulae reported to the cooperative study. *J Neurosurg* **25**: 467-490, 1966.
- 16) Shenkin HA: Arterio-venous anomaly of the brain associated with cerebral aneurysm. Case report. *J Neurosurg* **34**: 225-228, 1971.
- 17) Stewart RM, Ashby WR: Angioma arteriale recomosum in an acallosal brain. A clinical and pathological report. *J Neurol Psychopathol* **11**: 289-303, 1931.
- 18) Suzuki J, Onuma T: Intracranial aneurysm associated with arteriovenous malformations. *J Neurosurg* **50**: 742-746, 1979.
- 19) Waish FB, King AB: Ocular signs of intracranial saccular aneurysms. *Arch Ophthalmol* **27**: 1-33, 1942.