

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

Neurologia medico-chirurgica (1991.12) 31巻13号:966～971.

脳動静脈奇形摘出後併存する脳動脈瘤の消失が認められた1例

程塚 明、佐古和廣、米増祐吉、鈴木 望、藤田 力、大神
正一郎

脳動静脈奇形摘出後併存する脳動脈瘤の消失が認められた1例

程塚 明・佐古 和廣・米増 祐吉・鈴木 望・藤田 力・大神正一郎

Spontaneous Disappearance of Aneurysm after Total Removal of Accompanying Intracranial Arteriovenous Malformation

Case Report

Akira HODOZUKA, Kazuhiro SAKO, Yukichi YONEMASU, Nozomi SUZUKI, Tsutomu FUJITA and Shoichirou OHGAMI

Department of Neurosurgery, Asahikawa Medical College, Asahikawa, Hokkaido

Abstract

A 55-year-old male was hospitalized with severe headache. On admission, neurological examination revealed no abnormal findings. Plain computed tomography (CT) showed a slightly high-density area in the medial surface of the right parietal lobe. A marked enhancement in the same region was noted in enhanced CT. Cerebral angiography showed an arteriovenous malformation (AVM) in the medial surface of the right parietal lobe and two aneurysms on the right pericallosal artery which fed the AVM. In addition, a saccular aneurysm was noted at the anterior communicating artery. It was not possible to treat the AVM, two aneurysms nearby the AVM, and the unruptured anterior communicating artery aneurysm simultaneously with a single craniotomy. It was therefore decided to perform surgery for the AVM and two aneurysms nearby the AVM prior to clipping of the anterior communicating artery aneurysm. Total excision of the AVM and two aneurysms nearby the AVM was performed. Cerebral angiography performed 18 days after surgery revealed no AVM and also reduction in size was noted of the anterior communicating artery aneurysm. Three months later, repeated cerebral angiography showed disappearance of the aneurysm. This was further confirmed 15 months after surgery by angiography. From the literature, 117 cases of co-existence of AVM and aneurysms of the brain were collected and classified into three types according to their anatomical and hemodynamic correlation. It is suggested that hemodynamic stress, due to increased blood flow caused by the AVM, played a major role in the development of the aneurysm. Therefore, a conservative attitude toward operation on an aneurysm on the feeding system of the AVM may be justified, provided both vascular lesions cannot be treated with a single craniotomy.

Key words: arteriovenous malformation, aneurysm, hemodynamic stress

I はじめに

脳動静脈奇形(arteriovenous malformation: AVM)と脳動脈瘤の併存頻度は1.4%ないし9.3%とけっしてまれでは

ない^{2,8,20,21)}。その治療は両者に対する根治手術を原則とし、可能なかぎり one stage で行うとされているが、必ずしも原則通りに処置できない場合がある。今回、我々は頭頂部の AVM およびその近傍の動脈瘤と前交通動脈瘤の

旭川医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: A. Hodozuka, M.D., Department of Neurosurgery, Asahikawa Medical College, 4-5-3-11 Nishikagura, Asahikawa, Hokkaido 078.

受稿 1988年2月8日 受理 1989年6月7日

併存例において、AVMあるいはその近傍の動脈瘤からのクモ膜下出血で発症し、AVMおよびその近傍の動脈瘤摘出後約3ヵ月の脳血管写で前交通動脈瘤の消失を確認した1例を経験したので報告する。

II 症 例

〈患者〉 55才，男性

主訴：頭痛，悪心，嘔吐

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：30年前，突然頭痛，嘔吐が出現し，医師を受診したが異常を指摘されず，以後放置していた。1985年8月23日，頭痛，悪心，嘔吐が突発し，8月27日，当科に入院した。

入院時現症：血圧158/102 mmHg，脈拍60/min，体温37.2°Cであった。胸・腹部に異常なく，神経学的にも異常所見を認めなかった。

検査所見：一般血液検査，生化学的検査，心電図に異常を認めなかった。しかし，腰椎穿刺で髄液はxanthochromicであった。頭部単純CTでは右頭頂葉内側面に軽度の高吸収域を認めたが，脳底槽などには異常はなかった。造影CTでは高吸収域の部分に増強効果を認めた。また，この高吸収域は9月4日には消失していた。8月28日に施行した右頸動脈写および左椎骨動脈写では右 pericallosal artery および右後大脳動脈を feeder とし，上矢状静脈洞お

よび Galen 大静脈に流入する drainer を有する AVM を認めた (Fig. 1)。さらに，右 pericallosal artery 上に2個の動脈瘤と右 A₁-A₂ junction にも前交通動脈瘤が認められた (Fig. 2 left)。

以上より，今回の発作はAVMあるいはAVM近傍の動脈瘤からのクモ膜下出血によるものと考えた。

入院後経過：入院後，肺炎，肝機能障害を併発したため全身状態の改善を待って，10月31日，右頭頂開頭にてAVMおよび近傍の2個の動脈瘤の摘出術を施行した。脳表には数本のred veinを認め，AVMは頭頂葉内側面で脳表に顔を出し，クモ膜の混濁，癒着が著明であった。さらに右 pericallosal artery のAVM流入部のやや近位側に2個の動脈瘤を認めた。右 pericallosal artery に clipping を行ったのち，AVMおよび近傍の2個の動脈瘤を全摘した。術後，下肢に強い左片麻痺が出現したが，約10日間で消失した。

術後18日目に行った右頸動脈写ではAVMは消失しており，また前交通動脈瘤の縮小を認めた (Fig. 2 center) ため，11月29日に退院した。翌1986年1月23日，右頸動脈写を再検したところ，前交通動脈瘤は消失していた (Fig. 2 right)。1年後の1987年1月26日の脳血管撮影にては動脈瘤を認めなかった。

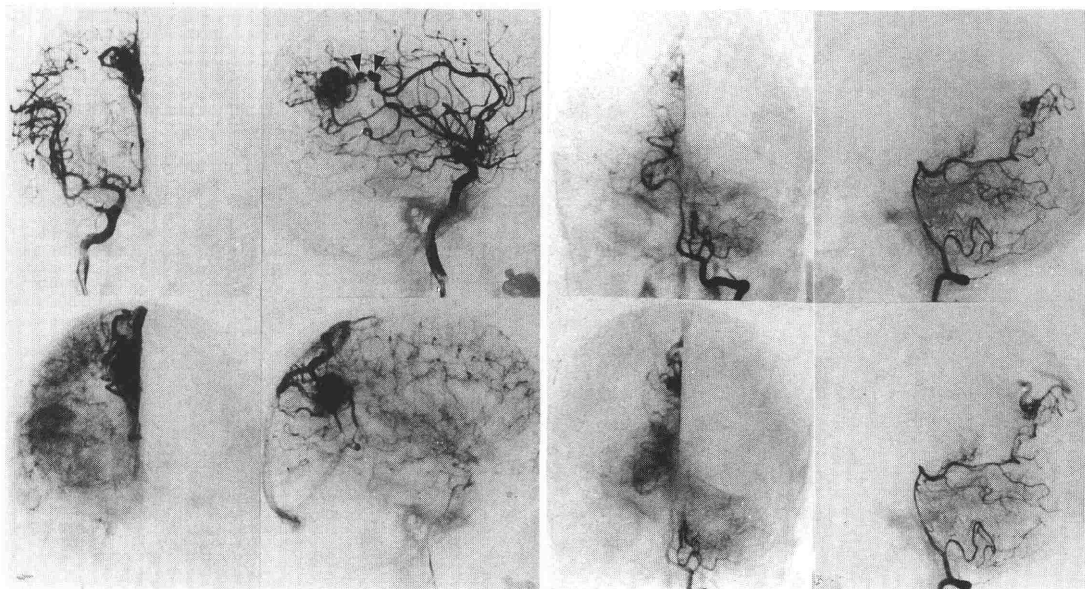


Fig. 1 Preoperative right carotid (left) and left vertebral angiograms (right), showing an arteriovenous malformation (AVM) in the medial surface of the right parietal lobe, which is fed by the right pericallosal and posterior cerebral arteries and drained into the superior sagittal sinus and great vein of Galen. There were two aneurysms (arrowheads) on the right pericallosal artery.

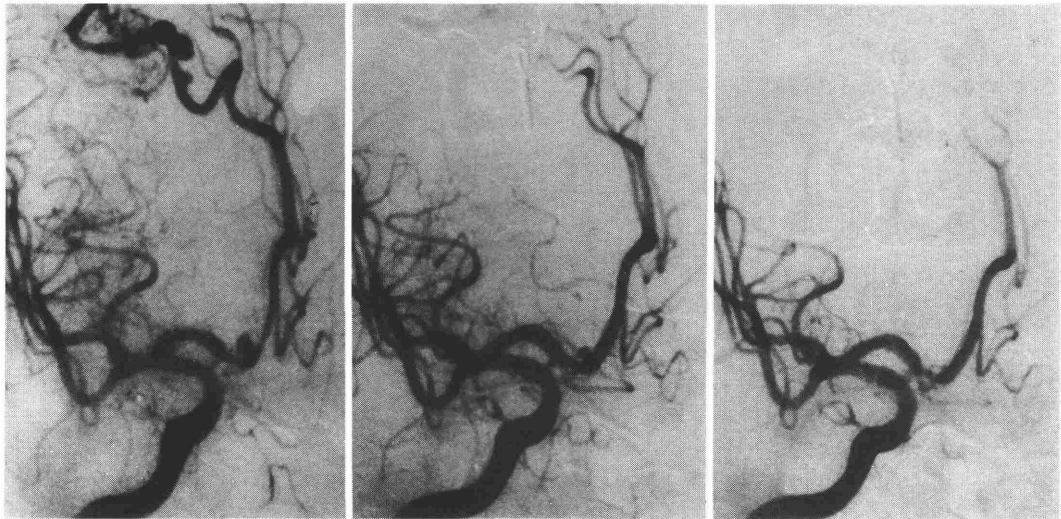


Fig. 2 *left*: Preoperative right carotid angiogram, showing a saccular aneurysm at the anterior communicating artery. *center*: The aneurysm has reduced in size 18 days after surgery. *right*: The aneurysm has disappeared 3 months after surgery.

III 考 察

AVMと動脈瘤の併存例の病因については、血行力学説^{5,8,10,14,18,20,24,25}、多発性先天性血管発生異常説¹、偶然合併説²が挙げられている。

文献上、AVMと動脈瘤の併存例は本例も加えて190例の報告を集めることができた¹⁻³²。そのうち、詳細な記載のある117例について、①AVMと動脈瘤の位置関係、②出血の有無および出血源、③手術治療の有無および術式、④再出血の有無および部位、⑤動脈瘤の形状の変化などについて検討してみた。検討に当っては、Perretら²¹の分類に準じてAVMと動脈瘤の位置関係を3群に分けた。すなわち、A群：動脈瘤がAVMのfeeding artery上にあるもの、B群：動脈瘤がAVMのfeeding system上にあるもの、C群：動脈瘤が解剖学的にAVMと無関係な動脈上にあるものとした。したがって、多発性動脈瘤の症例では2群以上に重複するものもあり、これは各群ごとに1例と考え、117例は都合131例として集計した。

まず、群別の例数の割合、出血の有無および出血源、転帰についてみると(Table 1)、頻度はA群50%、B群33%、C群17%で、A、B群で全体の83%を占めており、hemodynamic stressが動脈瘤の発生にきわめて大きな要因となっていることが窺われた。また、全体の87%の症例は出血発作で発症している。出血源については不明のものがほぼ半数を占めるが、診断のついたものではA群およびC群ではAVMと動脈瘤の出血は同数であるが、B群ではAVMからの出血が動脈瘤からのそれを上回っている。転

Table 1 Incidence of hemorrhage, rupture site, and mortality rate in cases of co-existent arteriovenous malformation (AVM) and aneurysm

Location of aneurysm*	No. of cases	Rupture site			Unruptured cases
		AVM	Aneurysm	Not specified	
Group A	65 (50%)	17	17	24	7
Group B	44 (33%)	8	4	23	9
Group C	22 (17%)	6	6	9	1
Total	131 (100%)	31	27	56	17
Outcome alive	95	18	22	43	12
died	36	13	5	13	5

*Group A: on the feeder, Group B: on the feeding system, Group C: others.

帰についてはAVMの破裂による死亡が31例中13例(42%)、動脈瘤破裂によるものが27例中5例(19%)となっており、AVM破裂のほうが転帰は悪い。

次に手術治療の有無および術式についてみると、3群の合計では一期的、二期的にかかわらず両者の処置を行ったものが51例(39%)と最も多く、以下未処置46例(35%)、AVMのみ19例(15%)、動脈瘤のみ15例(11%)となっている。再出血は131例中10例(7.6%)に認め、処置例85例中6例(7.1%)となっている。処置例ではAVMのみ処置の19例中5例(26.3%)に出現し、その内訳はA群3例(15.8%)、B群2例(10.5%)となっている。しかし、B

群の2例はともに出血源不明例であった。また、動脈瘤のみ処置の15例中1例(6.7%)でAVMからの再出血を認めている。自然経過を反映すると思われる未処置例では、AVM破裂で発症しAVM再破裂をきたしたものが8例中3例(37.5%)、動脈瘤破裂で発症し動脈瘤再破裂をきたしたものが4例中1例(25.0%)となっている(Table 2)。

動脈瘤の形状の変化については、出現、拡大、縮小、消

失について検討してみた(Table 3)。全体のうち12例で変化が認められ、A群では動脈瘤の出現が1例、縮小が1例、消失が5例であった。B群では拡大が3例、縮小が1例、消失が1例で、C群では変化した症例は認めなかった。初回治療別にみると、AVMのみの処置19例中4例(21.1%)で動脈瘤は縮小・消失し、新たに出現が1例(5.3%)となっている。両者処置51例では、多発性動脈瘤のうち処置できなかった残存動脈瘤の消失が2例(3.9%)、wrapping後消失が1例(2.0%)となっている。一方、動脈瘤のみcoatingした1例(6.7%)で動脈瘤の拡大を認めている。AVMの摘出で動脈瘤の縮小、消失が起こる理由として、Patersonら²⁰⁾、Shenkinら²⁵⁾も報告しているように、AVMの消失による血流量の低下が誘因になったものと考えられる。

今回のreviewでは、動脈瘤の発生へのhemodynamic stressの関与、死亡率ではAVM破裂のほうが転帰の悪いこと、自然経過ではAVM再破裂が多い傾向にあること、AVMのみ処置後に動脈瘤破裂が生じやすいこと、および逆にAVMのみ処置後に動脈瘤の縮小、消失が起こりやすいことなどが窺われた。

Table 2 Incidence of rerupture after initial treatment

Subject of operation	No. of cases	Reruptured cases
AVM	19 (15%)	5 (26.3%)*
Aneurysm	15 (11%)	1 (6.7%)
Both lesions	51 (39%)	0
No surgery	46 (35%)	4 (8.7%)**
Total	131 (100%)	10 (7.6%)

*Including three Group A (15.8%) and two Group B (10.5%) cases. **Including three (37.5%) of eight reruptured AVMs and one (25.0%) of four reruptured aneurysms.

Table 3 Summary of reported cases with change in size of aneurysm

Author (Year)	Age/ Sex	Feeder of AVM	Site of AN*	Rupture site	Subject of operation*	Postoperative change*
Group A:						
Reigh and Lemmen (1960) ²²⁾	33/M	rt ACA, rt MCA, lt ACA	rt ACA, lt ACA	AVM	AVM	lt ACA AN disappeared
Takara <i>et al.</i> (1980) ²⁷⁾	56/F	lt AICA	lt AICA	AN	AVM and AN (wrapping)	AN and AVM disappeared
Ohta <i>et al.</i> (1980) ¹⁶⁾	26/M	rt ACA, rt MCA	rt LSA	AVM	AVM	rt LSA AN appeared
Hatanaka <i>et al.</i> (1980) ⁷⁾	25/M	lt ACA, lt MCA, lt PCA	lt MCA (2)	AVM	AVM	lt MCA AN (2) disappeared
Koulouris and Rizzoli (1981) ¹¹⁾	40/F	lt PCA	lt PCA	?	AVM	lt PCA AN disappeared
Hayashi <i>et al.</i> (1982) ⁸⁾ case 1	39/M	lt ACA	lt ACA (3)	AVM	AVM and AN (1)	lt ACA AN (2) disappeared
case 3	25/M	rt MCA, rt LSA, rt AchA	rt LSA	AVM	none	rt LSA AN reduced
Group B:						
Cronqvist and Troupp (1966) ³⁾	61/M	lt ACA	lt ACA, rt ACoA	?	none	rt ACoA AN enlarged
Shenkin <i>et al.</i> (1971) ²⁵⁾	74/M	rt MCA	rt ICA	AVM	AVM	rt ICA AN reduced
Tognetti <i>et al.</i> (1983) ²⁸⁾ case 1	33/F	bil ACA, bil MCA	lt ICA	none	AN (coating)	lt ICA AN enlarged
case 2	54/M	rt ACA, lt ICA	ACoA	AN	none	ACoA AN enlarged
Present case	55/M	rt ACA, rt PCA	rt ACA (2), rt ACoA	AVM	AVM and rt ACA AN (2)	rt ACoA AN disappeared

*Numerals in parentheses represent numbers of aneurysms. AN indicates aneurysm; ICA, internal carotid artery; ACA, anterior cerebral artery; MCA, middle cerebral artery; PCA, posterior cerebral artery; AICA, anterior inferior cerebellar artery; LSA, lenticulostriate artery; AchA, anterior choroidal artery; ACoA, anterior communicating artery.

さて、従来 AVM と動脈瘤の併存例の治療は両者に対する根治手術を原則とし、さらに可能なかぎり one stage で行うとされている。また、出血源から先に処置し、出血源が明らかでない場合および AVM が出血源でも動脈瘤がその近位にあれば、可能なかぎり動脈瘤の処置を先に行う⁹⁾とされている。これは動脈瘤のほうが出血する頻度が高く、なおかつ重症になる可能性が高いことが理由であると思われる。しかし、今回の我々の経験および文献的考察から AVM 再破裂が比較的多く、動脈瘤の発生、消褪に hemodynamic stress の関与が大きく、AVM 処置後に動脈瘤破裂だけでなく縮小、消失も認められ、AVM のほうが予後が悪いことなどより、今後は従来の治療方針に加え、動脈瘤が AVM の feeding system 上にあり、出血部位が AVM で、1 ヶ所の開頭で処置できない場合には AVM の処置を先行し、術後 2 週間頃に脳血管撮影を再検し、残存する動脈瘤の不変ないし拡大を認めれば二期的に動脈瘤の処置を行うことも考慮すべきであろう。一方、動脈瘤の縮小、消失を認めれば、さらに経時的に脳血管撮影にて経過をみることも不必要な手術を避ける意味で容認されよう。特に、高齢者や全身状態の悪い患者においては意味があると思われる。

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, 1979
- Boyd-Wilson JS: The association of cerebral angiomas with intracranial aneurysms. *J Neurol Neurosurg Psychiat* 22: 218-233, 1959
- Cronqvist S, Troupp H: Intracranial arteriovenous malformation and arterial aneurysm in the same patient. *Acta Neurol Scand* 42: 307-316, 1966
- Gács G, Vinűela F, Fox AJ, Drake CG: Peripheral aneurysms of the cerebellar arteries. Review of 16 cases. *J Neurosurg* 58: 63-68, 1983
- Garza-Mercado R, Rangel RA, Garza-Vazquez JF: Coexistence of bilateral aneurysms of the internal carotid arteries and an arteriovenous malformation of the left frontal lobe. *Surg Neurol* 21: 267-271, 1984
- Graf CJ, Perret GE, Torner JC: Bleeding from cerebral arteriovenous malformations as part of their natural history. *J Neurosurg* 58: 331-337, 1983
- 畠中 坦, Tovarű F, 鎌野秀嗣: 2 個の巨大 aneurysms を伴う、優位側半球深部の grade IV, arteriovenous malformation. *脳神経外科* 8: 701-716, 1980
- 林 靖二, 船橋利理, 板倉 徹, 仲 寛, 横手英義, 駒井則彦: 脳動脈瘤発生に及ぼす hemodynamic stress の重要性—脳動脈瘤・脳動脈静脈奇形合併例の分析—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 22: 219-226, 1982
- 鎌塚栄一郎, 知識鉄郎, 杉浦和朗: 動脈静脈奇形と動脈瘤の 1 合併例—両者に対する手術の優先順位について—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 22: 468-472, 1982
- Kikuchi K, Kowada M, Yoneya M: Association of arteriovenous malformation and intracranial aneurysm in the posterior fossa. *Surg Neurol* 22: 499-502, 1984
- Koulouris S, Rizzoli HV: Co-existing intracranial aneurysm and arteriovenous malformation. Case report. *Neurosurgery* 8: 219-222, 1981
- Litvak J, Yahr MD, Ransohoff J: Aneurysms of the great vein of Galen and midline cerebral arteriovenous anomalies. *J Neurosurg* 17: 945-954, 1960
- 三倉 剛, 上田 孝, 木下和夫: 脳動脈瘤を合併した脳動脈静脈奇形—自験 8 症例の検討—. *脳卒中* 8: 125-130, 1986
- Miyasaka K, Wolpert SM, Prager RJ: The association of cerebral aneurysms, infundibula, and intracranial arteriovenous malformations. *Stroke* 13: 196-203, 1982
- 新納正毅, 粟 博志, 小林栄喜, 三原忠統, 朝倉哲彦: 後脈絡動脈領域に脳動脈静脈奇形と脳動脈瘤の併存した 1 例—主に成因に関する考察を加えて—. *脳神経外科* 8: 659-665, 1980
- 大田英則, 伊藤善太郎, 中島健二, 深沢 仁, 上村和夫: 脳動脈静脈奇形に合併したレンズ核線条体動脈瘤の一例—その成因の文献的考察—. *脳と神* 32: 839-846, 1980
- Okamoto S, Handa H, Hashimoto N: Location of intracranial aneurysms associated with cerebral arteriovenous malformation: Statistical analysis. *Surg Neurol* 22: 335-340, 1984
- Østergaard JR: Association of intracranial aneurysm and arteriovenous malformation in childhood. *Neurosurgery* 14: 358-362, 1984
- 大槻泰介, 吉本高志, 鈴木二郎: 巨大動脈瘤様陰影からの破裂を伴った幼児脳動脈静脈奇形の救急手術治験例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 23: 673-676, 1983
- Paterson JH, McKissock W: A clinical survey of intracranial angiomas with special reference to their mode of progression and surgical treatment. *Brain* 79: 233-266, 1956
- 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 craniocerebral arteriovenous malformations and fistulae reported to the Cooperative Study. *J Neurosurg* 25: 467-490, 1966
- Reigh EE, Lemmen LJ: Cerebral aneurysms with other intracranial pathology. *J Neurosurg* 17: 469-476, 1960
- Santucci N, Gazzeri G, Tamorri M: Association of two saccular aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery with a cerebellar arteriovenous malformation fed by the same artery. Case report. *J Neurosurg Sci* 29: 109-112, 1985
- 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: 後頭蓋蓋に動脈静脈奇形と脳動脈瘤を合併した一例. *日外宝* 52: 399-406, 1983
- Shenkin HA, Jenkins F, Kim K: Arteriovenous anomaly of the brain associated with aneurysm. Case report. *J Neurosurg* 34: 225-228, 1971

- 26) 重森 稔, 原 邦忠, 白浜盛久, 川場知幸, 緒方武幸: 脳動脈瘤を合併した多発性脳血管奇形の1例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 22: 383-388, 1982
- 27) 高良英一, 井上憲夫, 河野 宏: 同一血管に併存した脳動脈瘤および脳動静脈奇形両者の動脈瘤包埋術後消失例. *脳神外科* 8: 587-591, 1980
- 28) Tognetti F, Limoni P, Testa C: Aneurysm growth and hemodynamic stress. *Surg Neurol* 20: 74-78, 1983
- 29) 土田博美, 宮崎雄二: 同一動脈, 同一領域に脳動脈瘤と脳動静脈奇形が存在した1例. *脳神外科* 4: 997-1003, 1976
- 30) Vieten H: Leuchtschirmphotographie im Mittelformat bei der cerebralen Angiographie. *Roentgenblaetter* 8: 167-183, 1955
- 31) 山田 弘, 坂井 昇, 三輪嘉明, 岸本 恭, 川井俊郎: 頭蓋内巨大血栓化動脈瘤を伴った多発性脳動静脈奇形の1例. *小児の脳神* 5: 99-106, 1980
- 32) 吉本尚規, 山中千恵, 広畑泰三, 斉藤裕次, 魚住 徹, 加藤幸雄: 脳動静脈奇形, 脳動脈瘤合併例 一偶然発見例の手術適応について一. *広島医* 38: 24-28, 1985

[別刷請求先: 〒078 北海道旭川市西神楽4線5号3-11, 旭川医科大学脳神経外科, 程塚 明]