

琉球大学学術リポジトリ

[症例報告]左レンズ核線状体動脈から発生した動静脈奇形,動脈瘤合併の1手術例

メタデータ	言語: 出版者: 琉球大学医学部 公開日: 2010-06-30 キーワード (Ja): キーワード (En): Basal ganglia, Lenticulostriate arteries, Arterovenous malformation, Aneurysm 作成者: 久田, 均, 六川, 二郎, 宮城, 航一, 高良, 英一, 中田, 宗朝, 金城, 則雄, 堀川, 恭偉, 銘苅, 晋, Kuda, Hitoshi, Mukawa, Jiro, Miyagi, Kouichi, Takara, Eiichi, Nakata, Munetomo, Kinjyo, Norio, Horikawa, Kyoi, Mekaru, Susumu メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/20.500.12000/0002015782

左レンズ核線状体動脈から発生した 動静脈奇形・動脈瘤合併の1手術例

久田 均 六川 二郎 宮城 航一 高良 英一
中田 宗朝 金城 則雄 堀川 恭偉 銘苺 晋

琉球大学医学部脳神経外科学教室

はじめに

脳内出血で発症した左大脳基底核部の動静脈奇形（以下AVMと略）と動脈瘤の合併した1治験例を報告する。基底核部のAVM・動脈瘤合併例は稀であり、渉猟した限りでは大田らの報告した1例のみである。¹⁾ AVMに合併しておこる脳動脈瘤の発生メカニズムと手術適応について、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例：38才 男性

主 訴：右不全片麻痺

既往歴：心疾患・高血圧の既往はない。

家族歴：特記することはない

現病歴：昭和58年12月3日、突然の意識障害・右完全片麻痺・全失語で発症した。他医において脳内出血の診断のもとに保存的治療を受けた。1週間後には簡単な単語の理解が可能となり、1ヵ月後には独歩可能となったが、なお右不全片麻痺および失語症が残ったので、昭和59年5月リハビリテーションを目的として他病院へ転院した。そのさいCT-scan で左大脳基底核部にcontrast mediumでenhanceされる病変部が認められたので、精査を目的として当科へ紹介、入院となった。

入院時現症：体格、栄養は中等度。右利き。右不全片麻痺。言語理解、発語、書字は中等度障害され読字はおおむね良好であり、既往歴からみて全失語からの回復過程にあるものと考えられた。その他、理学的な異常は認められな

った。

臨床検査所見：特に異常はない。

頭部単純撮影：特に異常所見はない。

頭部CT-scan：単純CT-scan では、左大脳基底核部に低吸収域があり左シルヴィウス裂が開大し、脳内出血の陳旧性変化と判断した(Fig. 1左)。造影CT-scan では低吸収域の内側すなわち内包の外側に9mm×18mm大の楕円形の高吸収域が造影された(Fig. 1右)。

左頸動脈撮影(昭和59年5月21日施行, Fig. 2, 3)：左大脳基底核部に、レンズ核線状体動脈(lenticulostriate arteries, LSA)の一枝から流入し、basal vein, anastomotic mesencephalic vein, internal cerebral vein, insular vein, の4本へ流出する10mm×7mmのnidusをもつAVMを認めた(模式図: Fig. 4)。また、nidusの外下方に接してLSAを母動脈とする直径約4mmの動脈瘤の存在を認めた。その後、約2ヵ月間に計3度左頸動脈撮影をおこなってこの合併の確認につとめた。AVMの性状、動脈瘤の大きさおよび両者の位置関係に変化は認められなかった。

手術所見：昭和59年7月24日、左前頭側頭開頭により根治術を行った。島回皮質の約1cmの深さで古い血腫腔に達し、まずその直下に動脈瘤が、ついで動脈瘤の内側にAVMのnidusがそれぞれ独立して見られた。動脈瘤はネック・クリップした後摘出し、AVMのnidusは剝離操作中出血したため焼灼凝固した。

病理組織学的所見(Fig. 5)：摘出した動脈瘤の内膜は肥厚して硝子様変性を示し、さらに内弾性板は断裂している。中膜は平滑筋細胞が消失して線維化しており、外膜との境界は不明瞭である。

術後経過：手術後一過性に片麻痺・失語が増悪したものの合併症なく経過し、1ヵ月後には顔面を含む右半身の軽い麻痺は残したものの独

歩可能となり、失語もほぼ術前のレベルに回復した。術後の左頸動脈撮影では、動脈瘤・AVMはもはや造影されなかった (Fig. 6)。

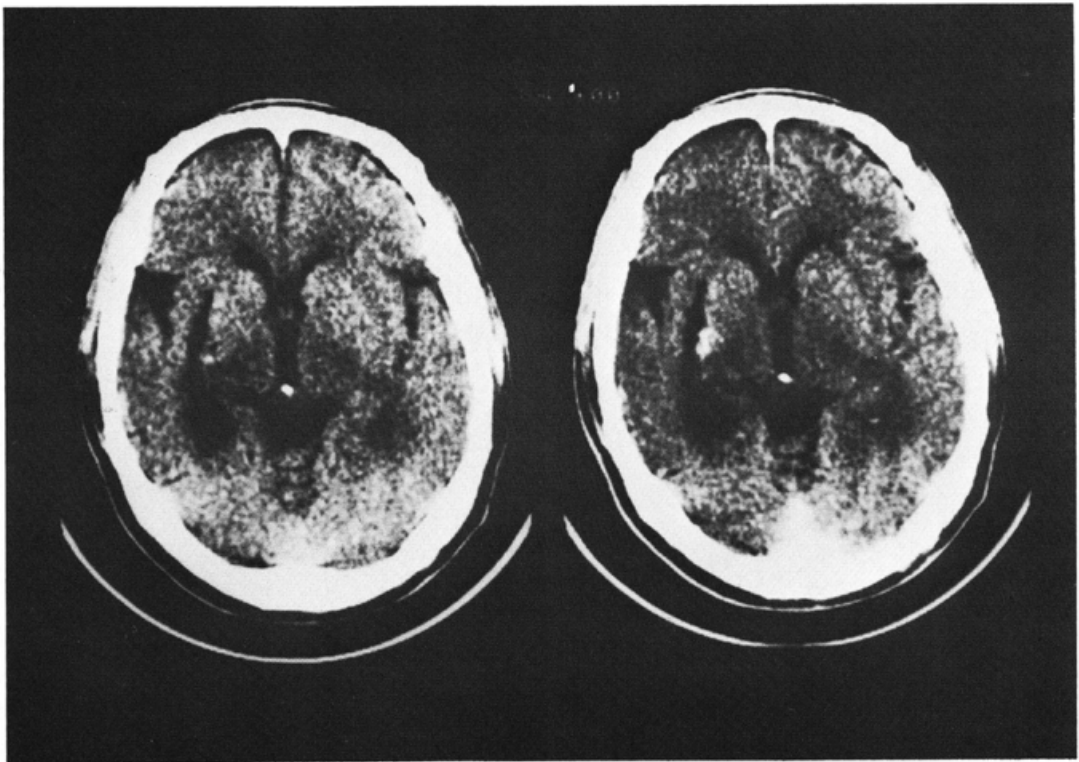


Fig. 1 Left: Plain CT-scan. A low density area is seen at the left putaminal region. Right: Contrast-enhanced CT-scan. An enhanced area locates lateral to the internal capsule.

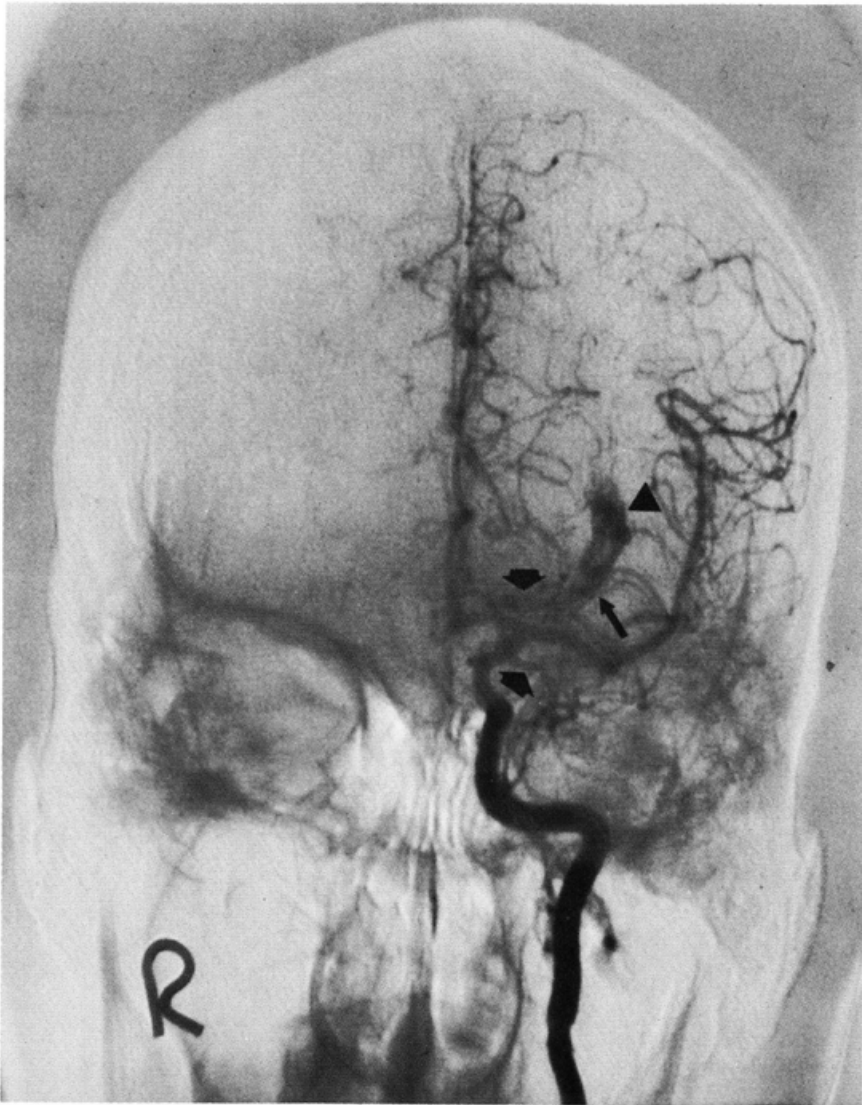


Fig. 2 A-P view of left CAG. There are a nidus of AVM (▲), feeding artery (↑) and draining veins (◆). A nidus of AVM locates at the left putaminal region.



Fig. 3 Lateral view of left CAG. The draining veins (▲) are clearly seen. A feeding artery (↑ : one of the lenticulostriate arteries) runs parallelly along with the middle cerebral artery, and an aneurysm (◆) is seen fronto-inferiorly to the nidus of AVM (▲).

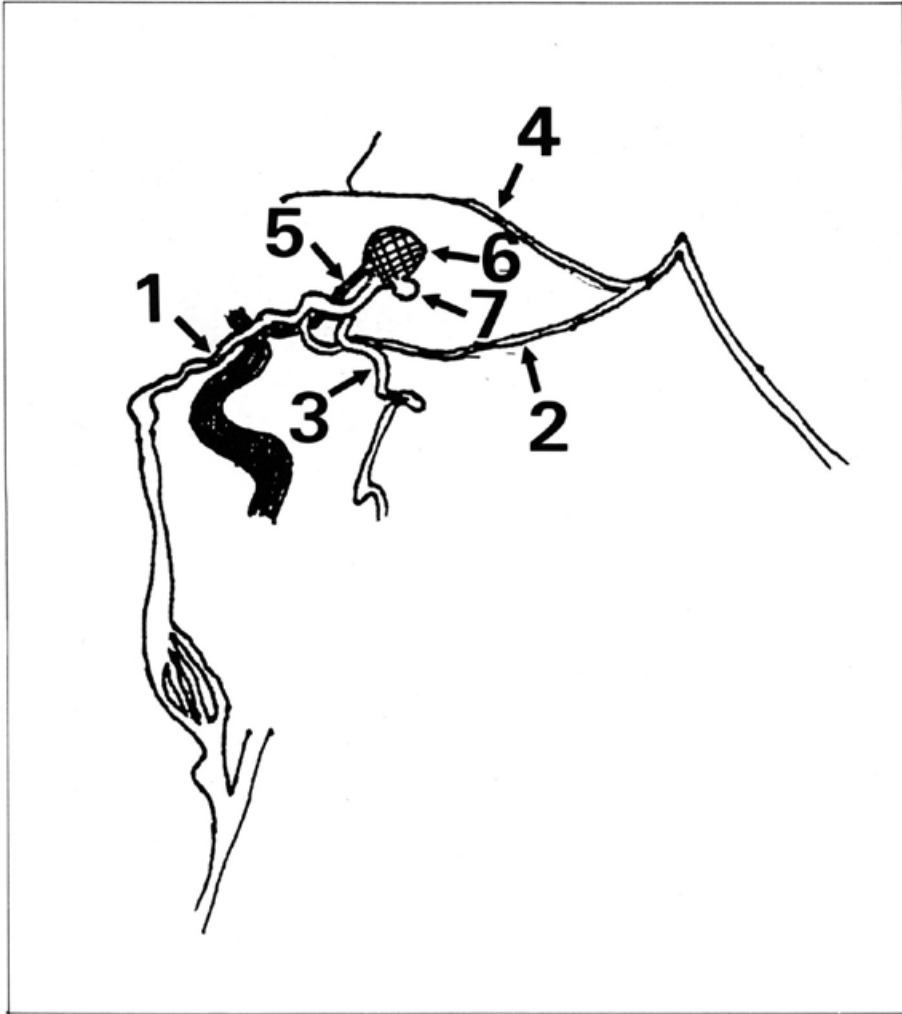


Fig. 4 Schematic drawing of left CAG. 1: insular vein, 2: basal vein, 3: anastomotic mesencephalic vein, 4: internal cerebral vein, 5: feeding artery, 6: nidus of AVM, 7: aneurysm.

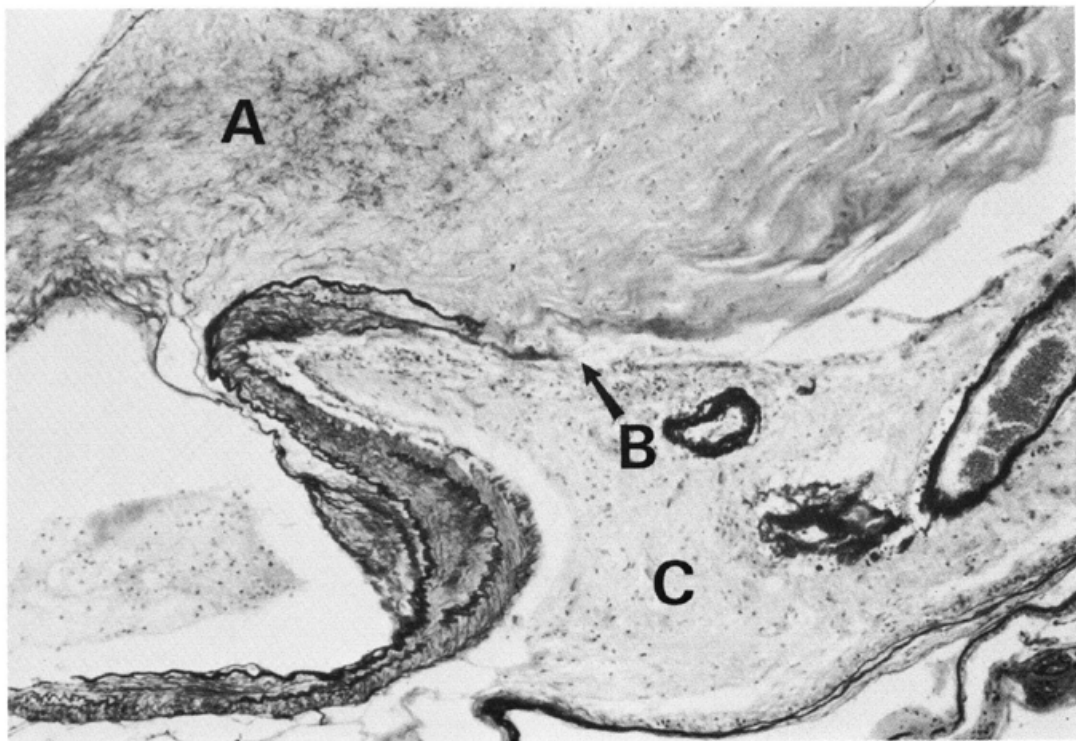


Fig. 5 Histology of aneurysm. (elastic tissue van Gieson stain, $\times 25$). The intima of aneurysm (A) is hypertrophic and of hyaline degeneration. The internal elastic lamina (B) is fragmented, and smooth muscle cells of the media (C) disappear.



Fig. 6 Left CAG after surgery. AVM and aneurysm could not be demonstrated any more.

考 察

AVMに動脈瘤が合併する頻度は、Paterson and McKissockによると110例中4例(3.6%),²⁾ Perret and Nishiokaによると490例中37例(7.6%),³⁾ Suzukiらによると140例中9例(6.4%)で、⁴⁾ さ程高いものではない。しかし、LSA末梢における動脈瘤を合併したAVMの症例は大田らが報告した1例のみである¹⁾。もともと、真性脳動脈瘤自身が単独で脳基底核部穿通枝動脈末梢に発生したという報告も見られない。⁵⁾

私どもの症例では、病理組織学的に、①内弾性板の断裂、②中膜筋層の綿維化、③内膜の硝子様変性・肥厚が認められた。①②は真性囊状動脈瘤に認められる所見であり、⁶⁾⁷⁾ ③はAVMにも認められる所見である。⁸⁾⁹⁾ すなわち、AVMでは病理組織学的に動脈でも静脈でもない硝子化した血管が認められ(McCormick⁹⁾)、また硝子化した内膜のnoduleが内腔へ突出した像がしばしば認められる(Bailey⁸⁾)。本症例の動脈瘤は、断裂はしているが内弾性板を有し、また内膜・中膜・外膜の3層構造を有して明らかな動脈の形態をとっていて、AVMの1部であるとは考えられない。また、手術所見上も動脈瘤とAVMはそれぞれ独立してLSAから生じていた。以上の事実から、本症例の動脈瘤は真性囊状動脈瘤であると判断した。

AVM・動脈瘤合併例における動脈瘤の発生メカニズムについては、1)先天性血管異常説(Congenital)¹⁰⁾、2)AVMによる血流量増大説¹¹⁾、3)同時発生説(coincident)がある。¹²⁾ Ariettiらは、頭蓋内AVM・脳動脈瘤・脳血管のびまん性の異常・腹部大動脈瘤を合併した特異なアルコール中毒患者1例を報告し、その発生はcongenitalなものであろうとした。¹⁰⁾ Shenkinらは、AVMの流入動脈に発生した動脈瘤がAVM摘出後著しく縮小した例をあげ、その発生にAVMによる血流量の増大が大きく関与していたであろうと推論しており、¹¹⁾ 現在でも多くの支持を得ている。¹⁴⁾ 他方、Boyd-Wilsonは、一般人口検群における脳動脈瘤発生率とAVM症例における脳動脈瘤発生率を比較してその間

に大きな差がないことから、AVM症例における脳動脈瘤の合併はcoincidentであるとした。¹²⁾ しかし、流入動脈に動脈瘤が発生した症例では血行動態の変化がその発生に何らかの影響を与えるという可能性を否定してはいない。本症例では、元来真性囊状動脈瘤が発生することはほぼないと考えられるLSA末梢に動脈瘤が存在しており、その発生にはAVMによる血流量の増大が大きく関与したであろうと推察される。

Perret and Nishiokaによれば、AVMの再出血率は23%であり、初回出血から2度目の出血までの間隔は数日から20年以上とまちまちである。³⁾ また、Forsterらによれば、1度出血した例ではその後の4年間に4例に1例は出血を生じる危険があり、それに伴って症状も悪化するという。¹³⁾ 他方、Norlen and Olivecronaによれば、脳動脈瘤の再出血率は20~50%であり、その死亡率は70~80%ときわめて高率である。¹⁴⁾ 本症例では、出血が脳動脈瘤とAVMのどちらに由来するものであったかの判断はできなかったが、いずれからの出血にしろ再出血の危険性は両病変によって倍増すると想定されるので、手術に踏み切った。

AVM・脳動脈瘤合併例の治療に関する記載は少ない。⁴⁾¹¹⁾ 両病変のうちAVMが病態生理学的に主役をなすと考えられるので、その治療はAVMに準ずるものと考えられる。基底核部を含めて内包・脳幹部のAVMは手術適応はないという意見があり、¹⁵⁾ そのため手術以外に、selective arterial embolizationや¹⁶⁾ stereotactic radiosurgeryが報告されている。¹⁷⁾ しかし、基底核部のAVMに対しては良好な手術結果を得たとする報告がある。¹⁸⁾ 金らは、脳深部領域にAVMが存在する場合、脳内血腫が存在しかつ神経症候の重篤な場合手術適応があると報告している。¹⁹⁾ 本症例ではCT-scan上AVM・脳動脈瘤の外側に陳旧性出血病変が存在し、さらに両者が内包より外側で被殻部領域に存在することから、手術侵襲とその結果は被殻出血におけるものと同程度であろうと推測した。

また、AVM・脳動脈瘤合併例における手術方法としては、①AVMをまず治療する¹¹⁾ か、

②両者を同時に治療する⁴⁾かの2つの対立意見がある。当症例では、脳内出血の既往があり、その出血源がAVM・脳動脈瘤のいずれからか判定し難いこと。しかも流入動脈と母動脈が同一であることから両者に対して同時に手術を行った。

結 語

私どもは、左大脳基底核部のレンズ核線状体動脈末梢に生じた動静脈奇形と動脈瘤が合併した1例で、開頭手術により両者をもとに根治しえたので、文献的考察を加えて報告した。要点は以下の如くである。

1. この部に脳動静脈奇形と動脈瘤が合併した症例は極めて稀である。

2. 脳動脈瘤の発生機序として、脳動静脈奇形による血流量増大が大きく関与していたものと推測した。

3. 両者が大脳深部領域に存在する場合、内包より外側であれば手術適応があると考ええる。

文 献

- 1) 大田英則, 伊藤善太郎, 中島健二, 深沢仁, 上村和夫: 脳動静脈奇形に合併したレンズ核線状体動脈の一例, 脳神経, 8 : 181-185, 1980.
- 2) Paterson, J. H. and McKissock, 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.
- 3) Perret, G. and 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.
- 4) Suzuki, J. and Onuma, T. : Intracranial aneurysms associated with arteriovenous malformations., J. Neurosurg., 50 : 742-749, 1979.
- 5) Suzuki, J., Hori, S. and Sakurai, Y. : Intracranial aneurysms in the neurosurgical clinics in Japan., J. Neurosurg., 35 : 34-39, 1971.
- 6) 大根田玄寿: 脳出血の病理, 文考堂, 東京, 1974.
- 7) Sahs, A. L. : Observations on the pathology of saccular aneurysms., J. Neurosurg., 24 : 792-806, 1966.
- 8) Bailey, O. T. : The vascular component of congenital malformations in the central nervous system., J. Neuropath.exp.Neurol., 20 : 170-184, 1961.
- 9) McCormick, W. F. : The pathology of vascular ("arteriovenous") malformations., J. Neurosurg., 24 : 807-816, 1966.
- 10) Arieti, S. and Gray, E. W. : Progressive multiform angiomas. Association of a cerebral angioma, aneurysms and other vascular changes in the brain., Arch. Neurol. Psychiat., 51 : 182-189, 1944.
- 11) Shenkin, H. A., Jenkins, F. and Kim, K. : Arteriovenous anomaly of the brain associated with cerebral aneurysm. Case report., J. Neurosurg., 34 : 225-228, 1971.
- 12) Boyd-Wilson, J. S. : The association of cerebral angiomas with intracranial aneurysms., J. Neurol. Neurosurg. Psychiat., 22 : 218-223, 1959.
- 13) Forster, D. M. C., Steiner, L. and Hakanson, S. : Arteriovenous malformations of the brain. A long-term clinical study., J. Neurosurg., 37 : 562-570, 1972.
- 14) Norlén, G. and Olivecrona, H. : The treatment of aneurysms of the circle of Willis., J. Neurosurg., 10 : 404-415, 1953.
- 15) 小沼武英, 鈴木二郎: 脳動静脈奇形の外科的療法, 88例の統計と手術成績, その follow-up, 脳外, 2 : 29-37, 1974.
- 16) Luessenhop, A. J. and Presper, J. H. : Surgical embolization of cerebral arteriovenous

malformations through internal carotid and vertebral arteries., *J. Neurosurg.*, 42 : 443-451, 1975.

- 17) Backlund, E. -O. : Stereotactic Radiosurgery in Intracranial Tumours and Vascular Malformations. : *Advances and Technical Standards in Neurosurgery*. Vol. 6., Krayenbühl, H., Springer-Verlag., Wien, New York,

1979.

- 18) Juhász, J. : Surgical treatment of arteriovenous angiomas localized in the corpus callosum, basal ganglia and near the brain stem., *Acta. Neurochir.*, 40 : 83-101, 1978.
- 19) 金是仁, 斎藤勇, 有竹康一, 馬杉則彦, 佐野圭司 : Paraventricular AVM, 第四回脳卒中の外科研究会講演集 : 1-9, 1975.

Arteriovenous malformation combined with an aneurysm arising from one of the left medial lenticulostriate arteries.

— A case report —

Hitoshi Kuda, Jiro Mukawa, Kouichi Miyagi,
Eiichi Takara, Munetomo Nakata, Norio Kinjyo,
Kyoji Horikawa and Susumu Mekaru

Department of Neurosurgery, University of the Ryukyus
School of Medicine.

Key words : Basal ganglia, Lenticulostriate arteries, Arteriovenous malformation, Aneurysm

Abstract

A case of arteriovenous malformation combined with an aneurysm in the left basal ganglia is presented.

A 38-year-old male patient was admitted in our hospital because of right hemiparesis and aphasia. He had history of left putaminal hemorrhage six months prior to the admission, and had since been treated conservatively. Left carotid angiogram demonstrated an AVM combined with an aneurysm, both arising from one of the medial lenticulostriate arteries. In order to prevent rebleeding, both lesions were surgically operated. The nidus of AVM was electrically coagulated, and the aneurysm was resected at the neck. Histological examination revealed that the intima of aneurysm was hypertrophic associated with hyaline degeneration. The internal elastic lamina was fragmented, and the smooth muscles of the media disappeared and were displaced by fibrosis. Postoperative angiogram showed no abnormal vessels any more.

It is suggested that increased blood flow might be the main factor to develop an aneurysm in such an AVM case. The hazard of rebleeding from such lesions is to indicate, in case possible, radical treatment of both lesions.