

脳出血で発症した多発性脳動静脈奇形の1例

大熊理弘、渡部寿一、大里俊明、片岡丈人、野呂秀策
萩野達也、遠藤英樹、中川原譲二、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科

Multiple arteriovenous malformations with cerebral hemorrhage : A case report.

Masahiro OKUMA, M.D., Toshiichi WATANABE, M.D., Toshiaki OSATO, M.D., Taketo KATAOKA, M.D.,
Shusaku NORO, M.D., Tatsuya OGINO, M.D., Hideki ENDO, M.D., Jyoji NAKAGAWARA, M.D.,
and Hirohiko NAKAMURA, M.D.

Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital and Hokkaido Brain Research Foundation,
Sapporo, Japan

Summary:

Multiple cerebral arteriovenous malformations (multiple AVMs), are rare without hereditary hemorrhagic telangiectasia, Rendu-Osler-Weber syndrome and Wyburn-Mason syndrome.

A 22-year-old woman suddenly developed severe headache and vomiting. Computed tomography (CT) scan showed right cerebellar hemorrhage. Cerebral angiography revealed two separated AVMs; one was in the right cerebellar lobe and another in the right occipital lobe. She had no other vascular lesions such as hereditary autosomal disease. Midline suboccipital craniotomy was performed and the ruptured right cerebellar AVMs were removed. Postoperative 13 months, she suddenly developed severe headache and left homonymous hemianopsia. CT scan showed right cerebral hemorrhage in the right occipital lobe. A right occipital craniotomy was performed and the ruptured left occipital AVMs were removed. Two more months after, the homonymous hemianopsia has improved. The patient has recovered very well.

When the risk of bleeding is taken into consideration about the un-treating AVM, after performing an extraction way to the ruptured AVM, it is desirable to treat at an early stage if possible.

Keywords: arteriovenous malformation (AVM); hemorrhage; multiple.

～はじめに～

遺伝性出血性毛細血管拡張症やRendu-Osler-Weber syndromeやWyburn-Mason syndromeのない多発性脳動静脈奇形（多発性AVM）は稀^{1,2,3}であり複数の病巣に対して、計画的な治療を行うことが重要である。脳出血で発症した右小脳AVMに対し摘出術を行い、待機中に併存していた右後頭葉AVMも出血発症した稀有な一例を経験したので、治療戦略、治療時期に関して検討しここに報告する。

～症 例～

〈患者〉22歳女性

〈主訴〉頭痛、嘔吐

〈現病歴〉

2011年2月、勤務中に頭痛・嘔吐が出現し、当院救急搬送となった。

〈既往歴〉猫アレルギー

〈家族歴〉祖母：脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血

〈入院時現症〉

JCS20、scanning speech、頭痛、嘔吐を認めた。四肢に明らかな麻痺は認めなかった。

〈検査所見〉

頭部CT上、両側小脳出血、急性水頭症を認めた。(Fig. 1) 脳血管造影検査を施行したところ、右椎骨動脈造影では、右小脳に最大径約2cmのnidusを認めた。流入動脈は、右上小脳動脈、右後下小脳動脈で、流出静脈は小脳上面、右上外側面へ抜ける2本を認め、Spetzler and Martin

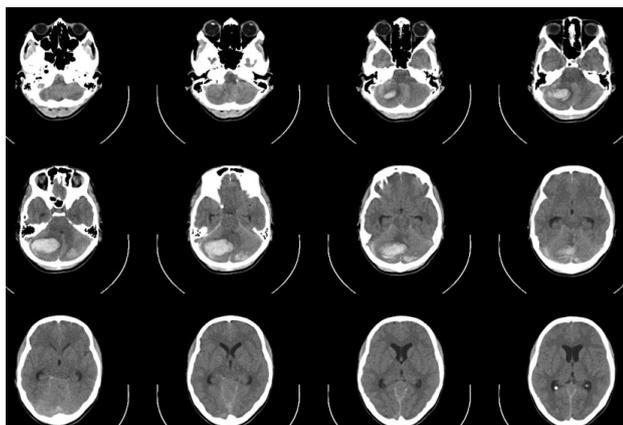


Fig. 1 入院時頭部CT

grade 1であった。(Fig. 2,3) 右内頸動脈造影では、右後頭葉にも最大径約1cmのnidusを認め、Spetzler and Martin grade 2であった。(Fig. 4,5)

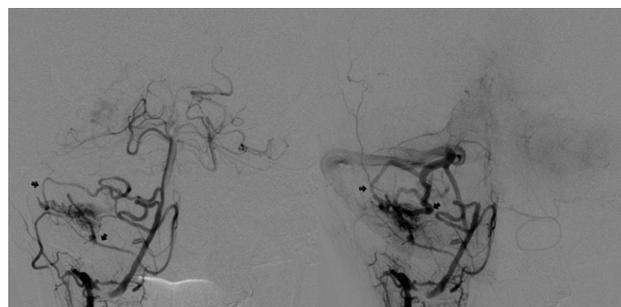


Fig. 2 右椎骨動脈造影 (正面)

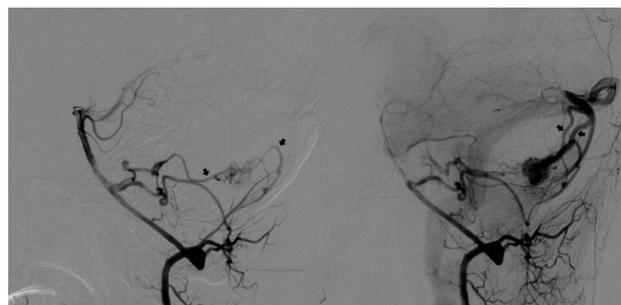


Fig. 3 右椎骨動脈造影 (側面)

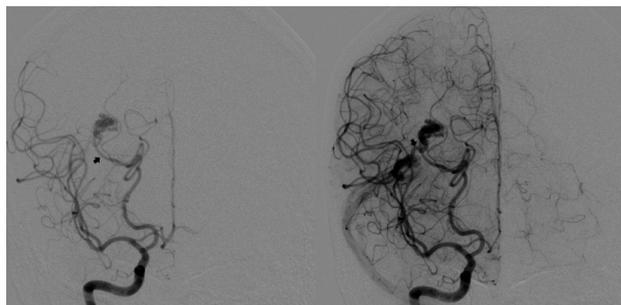


Fig. 4 右内頸動脈造影 (正面)

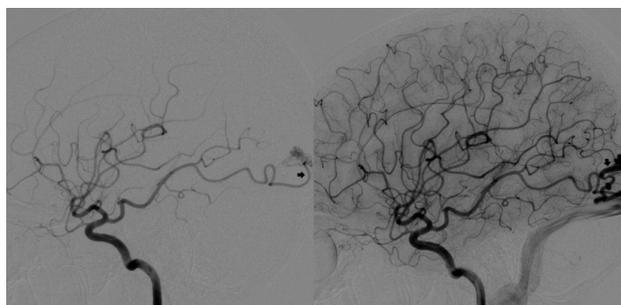


Fig. 5 右内頸動脈造影 (側面)

〈入院後経過〉

2011年2月、右小脳AVM、右小脳出血に対して開頭AVM摘出術及び開頭血腫除去術を施行した。術後CTでは、右小脳AVM及び出血は除去 (Fig. 6) され、右椎骨動脈造影では、nidusの消失を確認した。(Fig. 7) 残存する

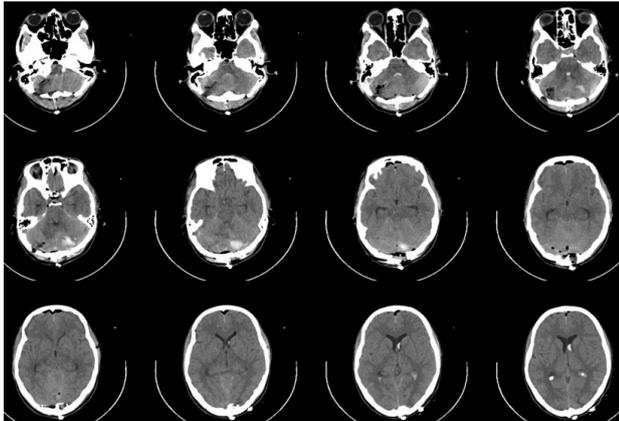


Fig. 6 頭部CT (小脳AVM摘出後)

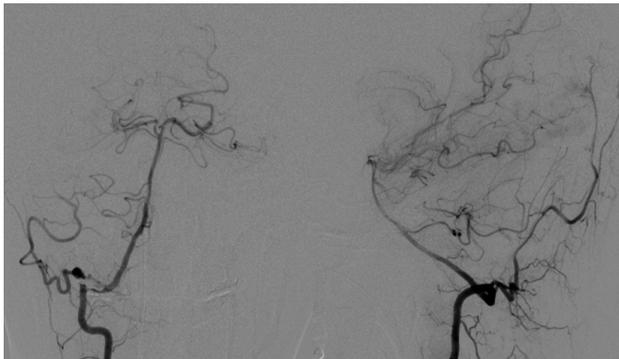


Fig.7 右椎骨動脈造影 (術後16日目)

右後頭葉AVMに関して、nidus、feeder、drainerはどれも肥大しなかった。(Fig. 8) 回復期リハビリを含め約3か月半のリハビリテーションを行い、自宅退院し、出血発症後7か月目にmRS 0となった。

2012年3月、残存する右後頭葉AVMの開頭摘出術を予定したが、手術予定日の前日に頭痛、左同名半盲が出現した。頭部CT上、右後頭葉の皮質下出血を認め (Fig. 9)、右後頭葉AVM破裂を疑い、同日緊急開頭摘出術を行った。術後CTでは、右後頭葉AVM及び出血は除去 (Fig.10) され、右内頸動脈造影では、nidusの消失を確認 (Fig.11,12) した。視野障害は徐々に改善し術後2か月で視野は改善した。

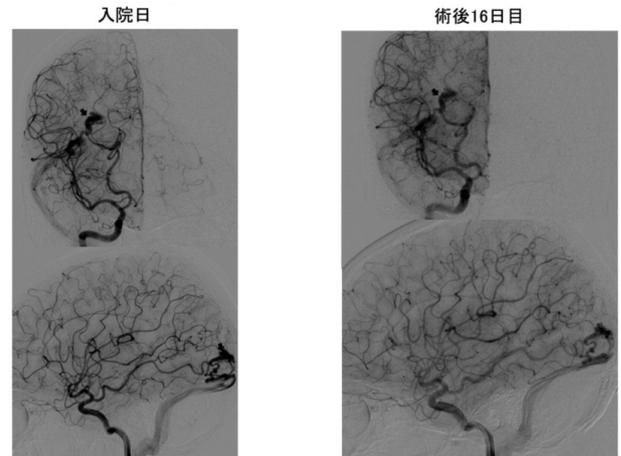


Fig. 8 右内頸動脈造影

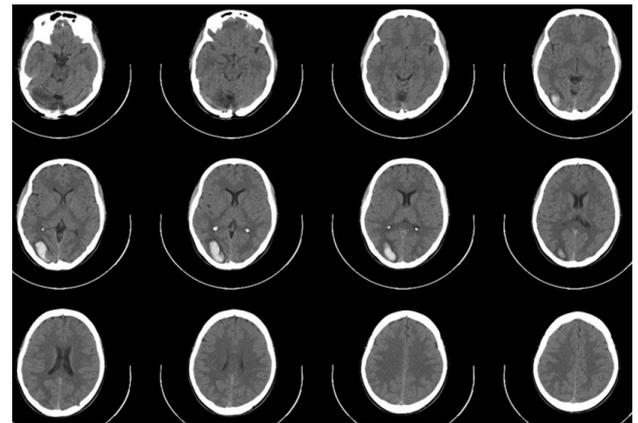


Fig.9 頭部CT (出血時)

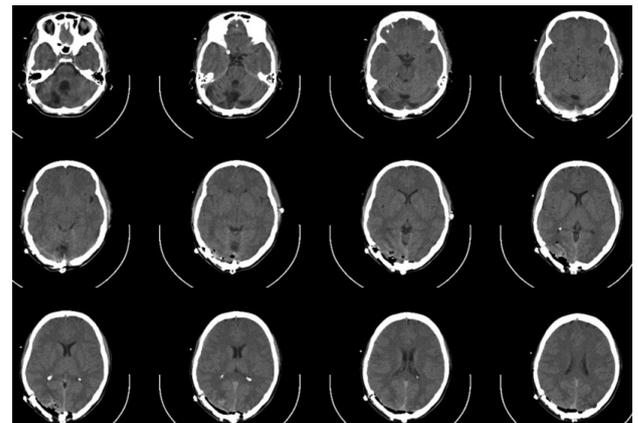


Fig.10 頭部CT (後頭葉AVM摘出後)

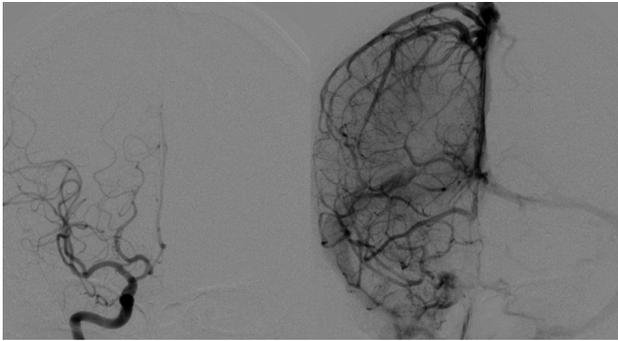


Fig.11 右内頸動脈造影（後頭葉AVM摘出後・正面）

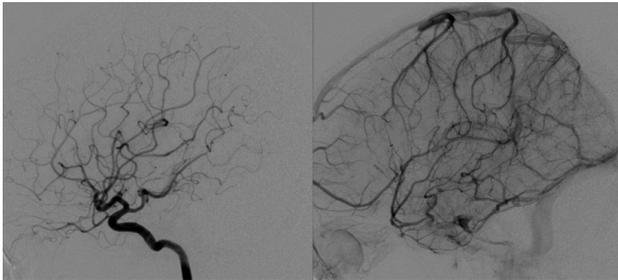


Fig.12 右内頸動脈造影（後頭葉AVM摘出後・側面）

～考 察～

多発性AVMは比較的稀な疾患で、AVMの3.2～4.0%と報告されており、治療に関しては、単発例と変わらない^{4,5,6}。

治療時期に関して、一期的に摘出する場合⁷と破裂AVMのみ摘出する場合⁵があり、意見が分かれている。今回、我々の施設では、リハビリ加療を優先し破裂した小脳AVMのみに対し摘出術を行った。Utsukiらは、AVMの血管支配域が同じ場合、残存AVMに対してストレスが増加し、残存AVMの流入動脈が肥大し、術後10日で残存AVMが破裂したと報告し⁶、またOkadaらも、AVMの血管支配域が違う場合においても、術後8か月で残存AVMが破裂したという報告を行っている⁸。すなわち、破裂AVMに対し摘出術を行った後、できるだけ早期に治療を行うことが望ましいと思われた。

本症例に関して、リハビリを優先し、1期的にはではなく、2期的に手術を行った。発症7か月後、mRS:0となり、残存AVMに対する手術を予定した。発症13か月後、血圧は安定していたものの、残存AVMが破裂し、手術予定日前日に緊急手術となった。この時、早期に手術を検討し

術前検査をすすめたことにより、緊急手術へ迅速な対応ができた。

～結 語～

多発性AVMの一例を経験した。残存AVMに関して出血のリスクを考慮すると、破裂AVMに対し摘出術を行った後、なるべく早期に治療を行うことが望ましい。

～文 献～

- 1) R. A. Willinsky, P. Lasjaunias, P. Burrows, et al: Multiple cerebral arteriovenous malformations (AVMs) . *Neuroradiology* 1990; 32 (3) :207-210
- 2) Wiegand S, Eivazi B, Werner JA, et al: Wyburn-Mason syndrome: a case report. *B-ENT*. 2010; 6 (2) :139-41
- 3) Kuo YH, Santoreneos S, Brophy BP, et al: Treatment of multiple arteriovenous malformations in pediatric patients with hereditary hemorrhagic telangiectasia and spontaneous hemorrhage. Report of two cases. *J Neurosurg*. 2007 Dec; 107 (6 Suppl) :489-94.
- 4) Salzman M, Scholtz H, Numaguchi Y. Multiple intracerebral arteriovenous malformations: report of three cases and review of the literature. *Surg Neurol*. 1992 Aug; 38 (2) :121-8.
- 5) Iizuka Y, Rodesch G, Lasjaunias P, et al: Multiple cerebral arteriovenous shunts in children: report of 13 cases. *Childs Nerv Syst*. 1992 Dec; 8 (8) :437-44.
- 6) S. Utsuki, A. Kurata, K. Fujii Multiple, et al: Arteriovenous Malformations with Hemorrhage. *Acta Neurochirurgica* 2002, Jan; 144 (1) :97-101.
- 7) Stone JL, Crowell RM, Oldershaw JB, et al: Bilateral parietal arteriovenous malformations: report of a case. *Neurosurgery*. 1983 Nov; 13 (5) :587-92.
- 8) Okada Y, Shima T, Yamane K, et al: Bilateral symmetrical cerebral arteriovenous malformations in the basal ganglia—case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* . 1992 Feb; 32 (2) :88-92.