

## 前篩骨動脈が流入する

# Intracerebral arteriovenous malformation の 1 例

岡波総合病院脳神経外科\*

奈良県立医科大学脳神経外科\*\*

橋本宏之\*, 米澤泰司\*, 榊寿右\*\*

### INTRACEREBRAL AVM FED BY THE ANTERIOR ETHMOIDAL ARTERY : A CASE REPORT

HIROYUKI HASHIMOTO\*, TAJI YONEZAWA\* and TOSHISUKE SAKAKI\*\*

*Department of Neurosurgery, Okanami General Hospital\**

*Department of Neurosurgery, Nara Medical University\*\**

Received May 17, 1996

*Abstract* : A 65-year-old male presented with a seizure attack.

He had undergone an episode of stroke 5 years before this admission. CT scans showed a cystic lesion in the left frontal lobe. This lesion was proven to be hemorrhagic stroke by MR imaging. Cerebral angiography disclosed an arteriovenous malformation in the left frontal lobe, fed by the anterior ethmoidal artery.

The arteriovenous malformation was accompanied by left internal carotid artery-posterior communicating artery aneurysm.

Operative procedures cleared the nidus of AVM, which was confined to the left frontal lobe. Total resection of the AVM and neck clipping of the aneurysm were accomplished. Intracerebral AVM fed by the anterior ethmoidal artery is very rare. Etiology of this rare lesion is unknown.

The hypothesis of emergence from embryonal anastomosis between the anterior ethmoidal artery and pial arteries is etiologically plausible. However, older patients predominating in these rare lesions may suggest an acquired hypothesis. This case is an intriguing intracerebral AVM fed by the anterior ethmoidal artery.

#### Index Terms

intracerebral AVM, anterior ethmoidal artery, dural AVM, cerebral aneurysm

#### はじめに

頭蓋内の動静脈奇形(以下 AVM)のうち前篩骨動脈が流入血管であるものは Lepoire ら<sup>1)</sup>の報告以来, 28 例が報告されている<sup>2-4)</sup>. その大多数が nidus が前頭蓋底に存在する, いわゆる前頭蓋窩硬膜動静脈奇形である. しかし前篩骨動脈が流入血管である intracerebral AVM は現在まで 5 例報告されているにすぎず非常に稀であ

る<sup>1,12-15)</sup>. 今回, 我々は前篩骨動脈が流入する intracerebral AVM とさらに脳動脈瘤を合併する症例を経験したので報告する.

#### 症 例

〈患者〉 65 歳 男性  
主訴: 痙攣発作  
家族歴: 特記事項なし

既往歴：脳卒中(1988年7月)

現病歴：1993年9月24日、テレビを見ていて、突然、全身痙攣を起こし意識消失の状態に救急搬送され当科入

院となる。

入院時現症：軽度見当識障害のみで他には明らかな神経学的異常は認めなかった。

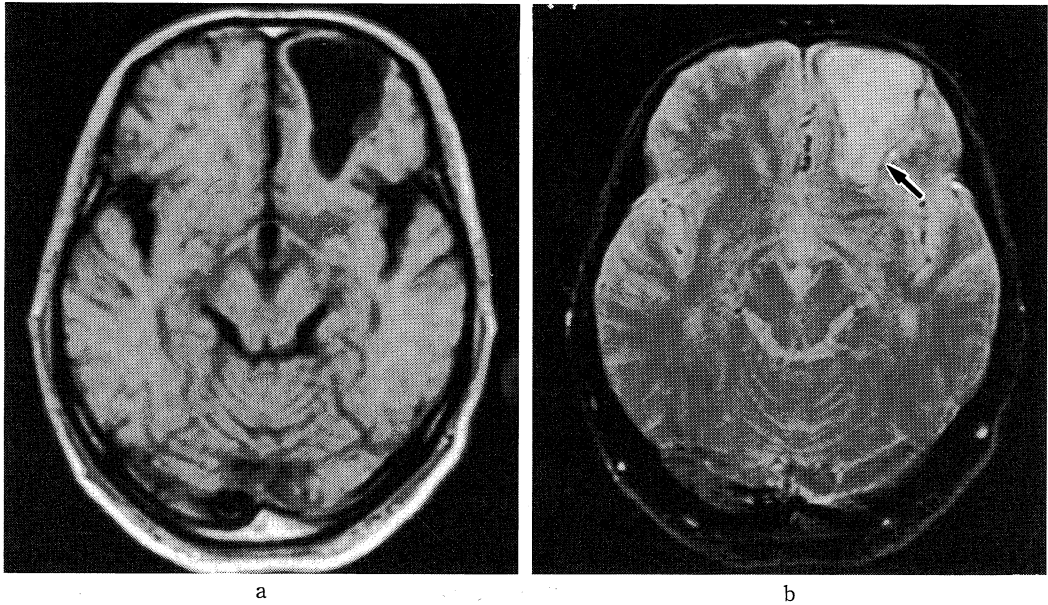


Fig. 1. MR images (a. T1-weighted image, b. T2-weighted image). T1-weighted image showed a low intensity area in the left frontal lobe. The lesion was disclosed as a high intensity area circumscribed by thin layer of low intensity (arrow) which indicated hemosiderin.

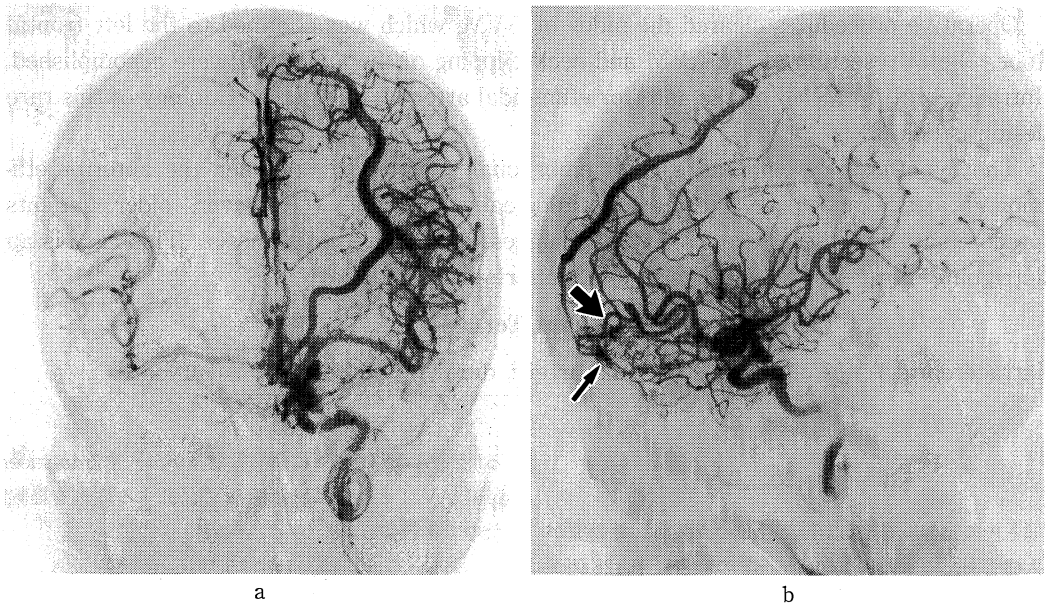


Fig. 2. Left internal carotid angiogram (a. anterior-posterior view, b. lateral view). An arteriovenous malformation was fed by the anterior ethmoidal artery (small arrow) and the frontopolar artery (large arrow). Left internal carotid artery-posterior communicating artery (IC-PC) aneurysm also could be seen.

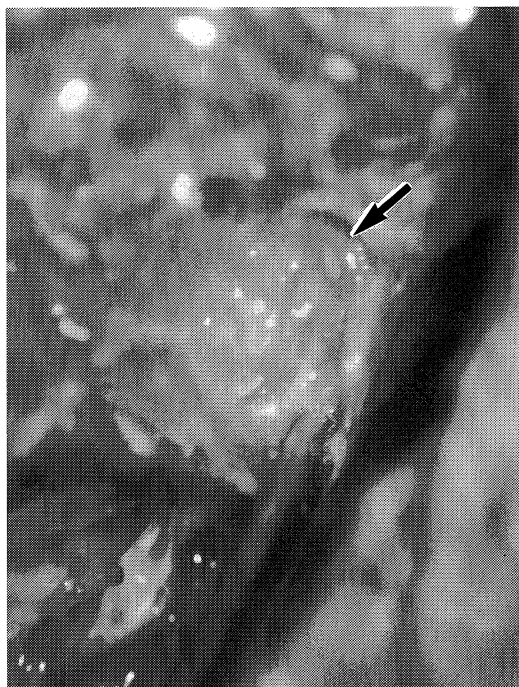


Fig. 3. Operative view disclosed intraparenchymatous nidus (arrow) of AVM in the left frontal lobe.

入院時脳波所見：両側前頭葉に4 Hzの発作性の徐波がみられた。

神経放射線学的所見

CT所見：単純CTでは左前頭葉に低吸収域を認めたが造影CTでは明らかに異常な造影像はみられなかった。

MRI所見：T1強調画像では左前頭葉に低信号域がみられ(Fig. 1 a), T2強調画像では左前頭葉病変は大部分が高信号域で示されその周辺はヘモジデリンとおもわれる細い帯状の低信号域で囲まれていた(Fig. 1 b)。

脳血管撮影：左内頸動脈写では前篩骨動脈と前頭極動脈を流入動脈とする左前頭葉のAVMをみとめ皮質静脈を介して上矢状静脈洞に流出していた。また内頸動脈後交通動脈分岐部動脈瘤をみとめた(Fig. 2 a, b)。外頸動脈を含めた他の血管撮影では明らかな異常を認めなかった。

手術：正中をこえる左前頭側頭開頭術を行った。前頭蓋底部硬膜からは多数の細い流入動脈が前頭葉に向かっていたのでまず電気凝固で処理し、次に内頸動脈後交通動脈分岐部動脈瘤のクリッピングを行った。前頭葉頭極部の黄褐色に変色していた部位に皮質切開を加えると淡黄色の液が流出し内壁にはnidusと考えられる異常血管網が認められた(Fig. 3)。他にfalx arteryと

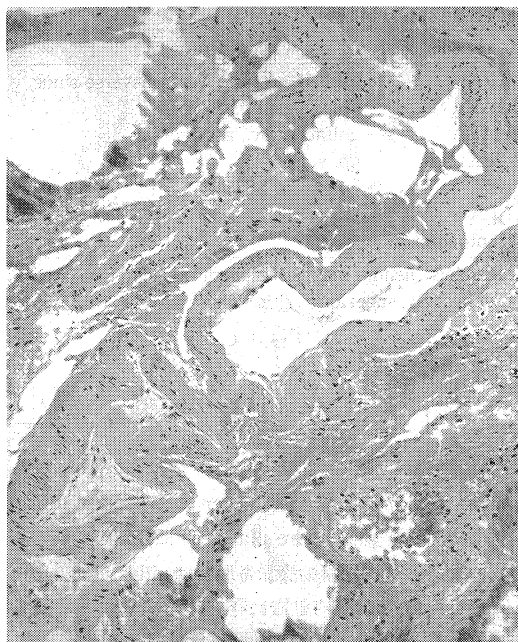


Fig. 4a. Microsection of the surgical specimen showed arteriovenous malformation manifested by elongated tortuous vessels and thickened intima (Hematoxylin-eosin stain×200).

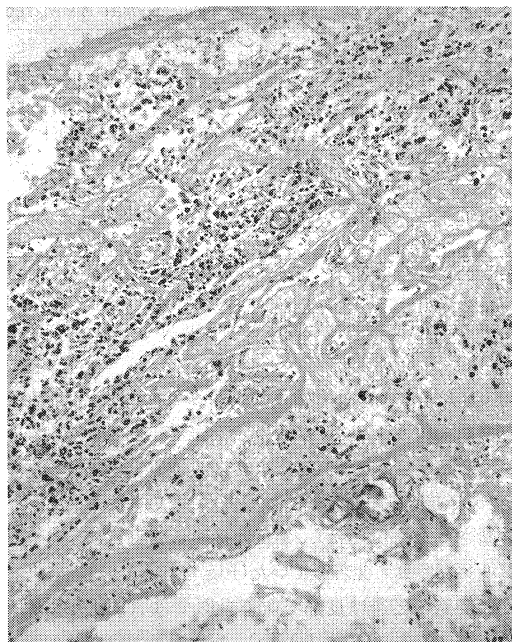


Fig. 4b. Histology of brain parenchyma adjacent to AVM revealed multiple deposits of hemosiderin (Hematoxylin-eosin stain×200).

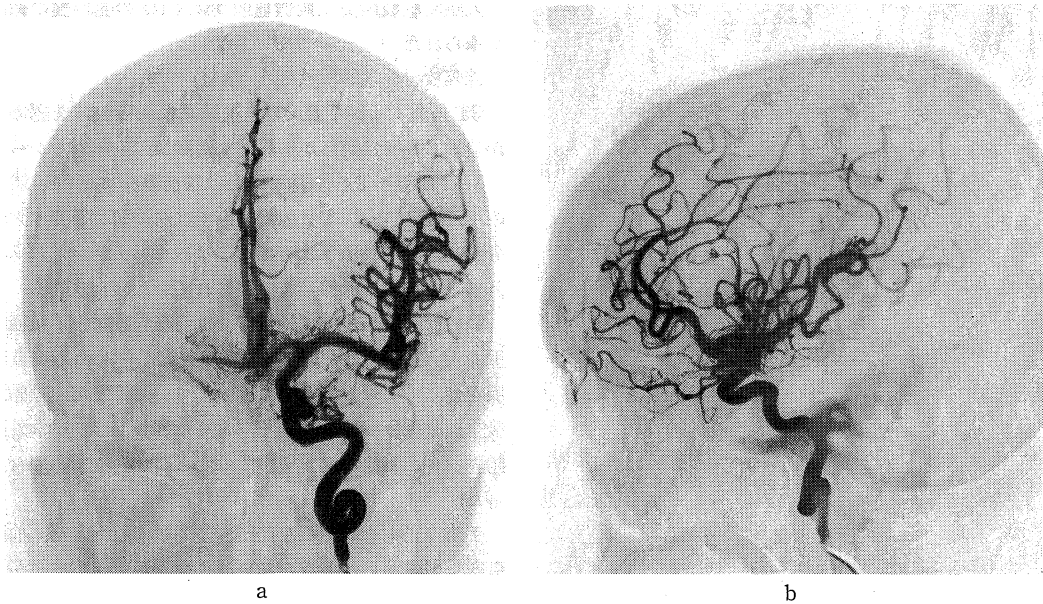


Fig. 5. Postoperative left internal carotid angiogram (a. anterior-posterior view, b. lateral view).

Arteriovenous malformation in the left frontal lobe and left IC-PC aneurysm could be completely obliterated.

Table 1. Intracerebral AVM fed by the anterior ethmoidal artery

| Author (year)       | Age | Sex | Onset    | Feeder  | Drainer                             |
|---------------------|-----|-----|----------|---------|-------------------------------------|
| Terada (1984)       | 64  | F   | SAH, ICH | l-AEA   | sphenopetrosal V., transverse sinus |
| Tiyaworabun (1986)  | 57  | M   | SAH, ICH | blt-AEA | p. v, basal v., SSS, CS             |
| Abumiya (1987)      | 61  | M   | ICH, SDH | blt-AEA | olfactory v., asal v.               |
| Tamiya (1989)       | 60  | F   | SAH      | r-AEA   | p. v, SSS                           |
| Yamada (1991)       | 75  | M   | SAH, ICH | l-AEA   | p. v, CS, SSS                       |
| Present case (1994) | 65  | M   | ICH      | l-AEA   | p. v, SSS                           |

l-frontopolar a.

Abbreviation: SAH, subarachnoid hemorrhage; ICH, intracerebral hematoma; SDH, subdural hematoma; right; l, left; blt, bilateral; AEA, anterior ethmoidal artery; p. v, pial vein; SSS, superior sagittal sinus; v, vein; SSS, superior sagittal sinus; v, vein; CS, cavernous sinus; a., artery

frontopolar artery から流入血管がみられ nidus は確かに左前頭葉に存在していて nidus を完全に摘出した。

組織学的所見：拡張蛇行した多数の血管と内膜肥厚がみられ、間隙には正常脳組織が存在していて動静脈奇形と診断された (Fig. 4 a)。また近接する脳実質にはヘモジデリンが多数、沈着していた (Fig. 4 b)。

術後経過：経過は良好で血管撮影では AVM と動脈瘤は完全に消失し (Fig. 5 a, b)、また CT では左前頭葉の低吸収域も消失していた。1 カ月後、患者は神経脱落症状なく退院した。

## 考 察

頭蓋内 AVM の分類に関しては Newton ら<sup>10)</sup> は nidus の部位に関係なく feeder により pure dural, mixed dural-pial, pure pial type に分類している。また、太田ら<sup>11)</sup> は硬膜動静脈奇形とは nidus が硬膜または硬膜からなる頭蓋内組織に存在する AVM と定義している。これらの分類に従えば、我々の症例は feeder が anterior ethmoidal artery と frontopolar artery であり dural-pial type の AVM といえる。また nidus は術中所見から明らかに前頭葉内にあり dural AVM ではなく intracerebral AVM となる。

ところで anterior ethmoidal artery を feeder とする頭蓋内動脈奇形は一般的に前頭蓋底部硬膜に nidus が位置する前頭蓋窩硬膜動脈奇形である。この部位の dural AVM は男性に好発し頭蓋内出血で発症することが多いとされている<sup>8)</sup>。ところが1984年に Terada ら<sup>13)</sup> は anterior ethmoidal artery が feeder であるが nidus が脳内に存在する AVM をはじめて報告して以来、同様な AVM は今まで他に4例が報告されている<sup>1,12,14,15)</sup> (Table 1)。これらの症例の発症年齢は57歳から75歳と比較的高齢で全例がクモ膜下出血ないし脳内出血で発症している。feeder に関しては5例すべてが片側ないし両側の anterior ethmoidal artery が feeder で他の artery の関与をみとめていない。我々の症例は今回、痙攣で発症したが MRI と術中所見からヘモジデリンがみとめられ1988年7月の卒中の既往は脳内出血であることは明らかとなった。血管撮影では anterior ethmoidal artery だけでなく frontopolar artery も feeder である点が前述の5例とは異なる点である。以上のことから Newton ら<sup>10)</sup> の分類によれば前述の5例は nidus が脳内に存在するが pure dural AVM となり、我々の症例は mixed dural-pial AVM となる。Terada ら<sup>13)</sup> は anterior ethmoidal artery を feeder とする intracerebral AVM の発生に関して、胎生期の anterior ethmoidal artery と pial artery の吻合が重要であり、AVM が形成されたとき anterior ethmoidal artery が feeder となる可能性を指摘している。ところが、我々の症例を含めた6例の anterior ethmoidal artery を feeder とする intracerebral AVM は全例、出血で発症し比較的高齢者である点は前頭蓋窩硬膜動脈奇形に似ていて発生機序に関しても後天的な機序を完全には否定できない。

発症様式に関しては前頭蓋窩硬膜動脈奇形では drainer が長い間 hemodynamic stress がかかって生じた vascular sac からの出血が高率に起こるとされ<sup>4)</sup>、また他の部位の dural AVM でも脳内出血をおこすことがある<sup>9)</sup>。しかし、我々の症例では明らかな vascular sac はなく術中所見でも明確な nidus 自体からの出血であったと考えている。

AVM が脳動脈瘤を合併する率は10-15%であるとされ、そのうちの60-95%は AVM に関係した hemodynamic stress が原因であると考えられている<sup>6,7,9)</sup>。我々の症例では左内頸動脈後交通動脈分岐部動脈瘤がみとめられ、その発生に関しては frontopolar artery が feeder であることから hemodynamic stress の関与も否定できないが、high flow な AVM ではない

ので動脈瘤が偶然合併したと考えられた。

治療に関して我々の症例の場合は intravascular surgery や radiosurgery の適応も治療の選択肢のひとつとおもわれたが、AVM と動脈瘤が合併していたので開頭手術が最良であると考えた。

以上、Anterior ethmoidal artery と frontopolar artery を feeder とする極めて稀な intracerebral AVM を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

## 文 献

- 1) 鏡谷武雄, 上山博康, 村田純一, 布村 充, 蝶野吉美, 小林延光, 阿部 弘, 齊藤久寿, 宮坂和男, 阿部 悟: 特異な draining vein を有した前頭蓋底硬膜動脈奇形の1例. *Neurol. Med. Chir. (Tokyo)* 17: 1195-1200, 1987.
- 2) Bitoh, S., Nakagawa, H., Arita, N. and Fujiwara, M.: Dural arteriovenous malformation in the anterior fossa: Case report. *Neurol. Med. Chir. (Tokyo)* 27: 1195-1200, 1981.
- 3) Dardenne, G. J.: Dural arteriovenous anomaly fed by ethmoidal arteries. *Surg. Neurol.* 10: 384-388, 1978.
- 4) Ghaus, M. M., Jeffrey, E. P., James, I. A. and Bharat, M.: Dural arteriovenous malformations and intracranial hemorrhage. *Neurosurgery* 15: 332-339, 1984.
- 5) 橋本宏之, 米澤泰司, 榎 寿右: 脳内出血で発症した特発性上矢状洞部硬膜動脈奇形の1例. *脳神経外科* 22 (9): 871-875, 1994.
- 6) Hayashi, S., Arimoto, T., Itakura, T., Fujii, T., Nishiguchi, T. and Komai, N.: The association of intracranial aneurysms and arteriovenous malformation of the brain: Case report. *J. Neurosurg.* 55: 971-975, 1981.
- 7) Koulouris, S. and Rizzoli, H. V.: Coexisting intracranial aneurysm and arteriovenous malformation: Case report. *Neurosurgery* 8: 219-222, 1981.
- 8) Lepoivre, J., Montaut, J., Bouchot, M. and Laxenaire, M.: Aneurysmes arterioveineux intrafrontaux vascularises par l'artere ethmoidale anterieure: A propos de trois observations. *Neuro-chirurgie (Paris)* 9: 159-166, 1963.
- 9) Miyasaka, K., Wolpert, S. M. and Prager, R. J.: The association of cerebral aneurysms, infun-

- dibula, and intracranial malformations. *Stroke* **13**: 196-203, 1982.
- 10) **Newton, T. H. and Conqvist, S.** : Involvement of dural arteries in intracranial arteriovenous malformations. *Radiology* **93**: 1071-1078, 1969.
  - 11) **太田富雄, 梶川 博** : 硬膜動静脈奇形. *Neurol. Med. Chir. (Tokyo)* **18 Part II**: 439-472, 1978.
  - 12) **田宮 隆, 重松秀明, 土本正治** : クモ膜下出血で発症した前頭蓋底部硬膜動静脈奇形の1例. *尾道市病医誌*. **4 (2)**: 1989.
  - 13) **Terada, T., Kikuchi, H., Karasawa, J.** and **Nagata, I.** : Intracerebral arteriovenous malformation fed by the anterior ethmoidal artery: Case report. *Neurosurgery* **14**: 578-582, 1984.
  - 14) **Tiyaworabun, S., Vonofakos, D. and Lorenz, R.** : Intracerebral arteriovenous malformation fed by both ethmoidal arteries. *Surg. Neurol.* **26**: 375-382, 1986.
  - 15) **山田興徳, 奥地一夫, 辻 英彦, 森本江津子, 藤川朗, 小延俊文, 宮本誠司, 榑 寿右** : 前篩骨動脈を流入血管とする Intracerebral AVM の1例. *脳神経外科* **21 (5)**: 459-462, 1993.