

## Venous angioma with arteriovenous shuntの1例

徳島赤十字病院 脳神経外科<sup>1</sup>、亀田総合病院 脳神経外科<sup>2</sup>、秋田県立脳血管研究センター 脳神経外科<sup>3</sup>

里見 淳一郎<sup>1</sup>、波出石 弘<sup>2</sup>、師井 淳太<sup>3</sup>、小林 紀方<sup>3</sup>、鈴木 明文<sup>3</sup>、安井 信之<sup>3</sup>

### 【はじめに】

動静脈シャント (arteriovenous shunt) を有する静脈性血管腫(venous angioma: VA)の報告は散見されるが、その自然歴は不明な点が多く、治療方法についても確立した見解は得られていない。今回、脳内出血で発症したVA with AV shuntに対し、開頭手術、及び定位放射線治療 (γナイフ) を行った1例を経験したので報告する。

### 【症例】 22歳、男性。

アルバイト中に突然昏倒し救急搬送された。来院時意識昏迷 (GCS: E2V2M2, JCS 20-100)、右共同偏視、左半側空間失認、左身体失認、左上下肢不全麻痺など認めた。CTで長径5cmの大きな右基底核出血を認め (Fig.1) , 脳血管撮影では右ACA (A1), MCA (M1-M2) から多数の流入血管が基底核に集簇し、拡張した髄様血管が描出された。動脈相後期においてumbrella signを呈しながら脳底静脈につながる導出静脈を認め (Fig. 2) 、VA with AV shuntと診断した。

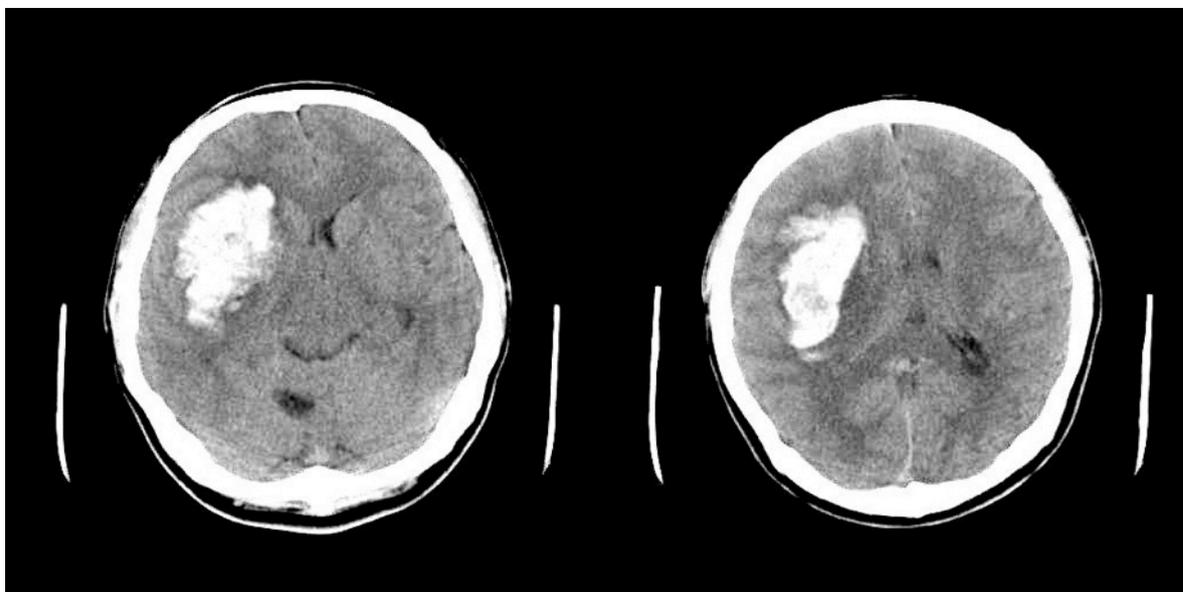


Fig.1 初診時頭部CT

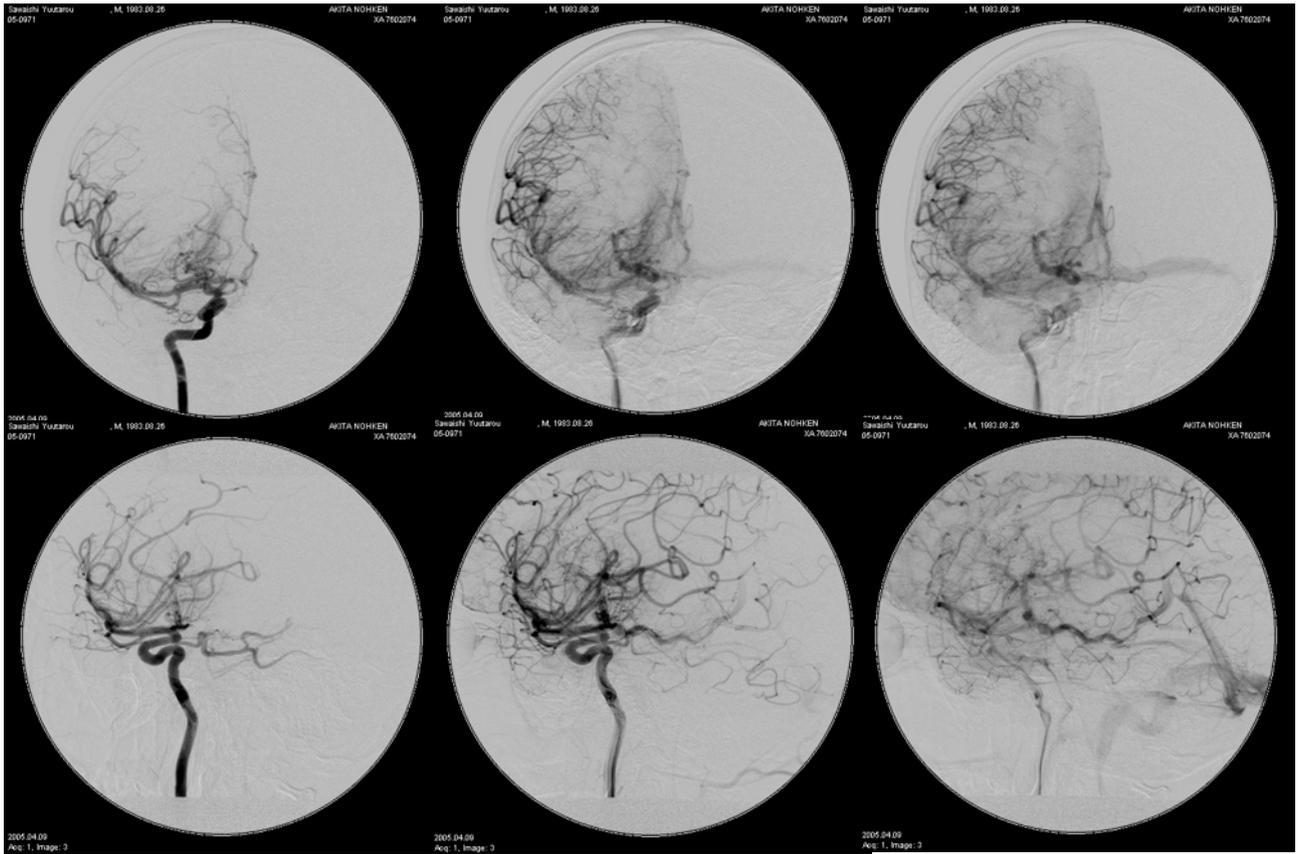


Fig. 2 初診時脳血管撮影 上段：前後像、下段：側面像（動脈相早期、中期、後期）

検査後、脳内出血の増大に伴うヘルニア徴候を呈したため（Fig. 3）、緊急で減圧開頭，脳内血腫除去および流入血管のクリッピングによる閉塞を行った。

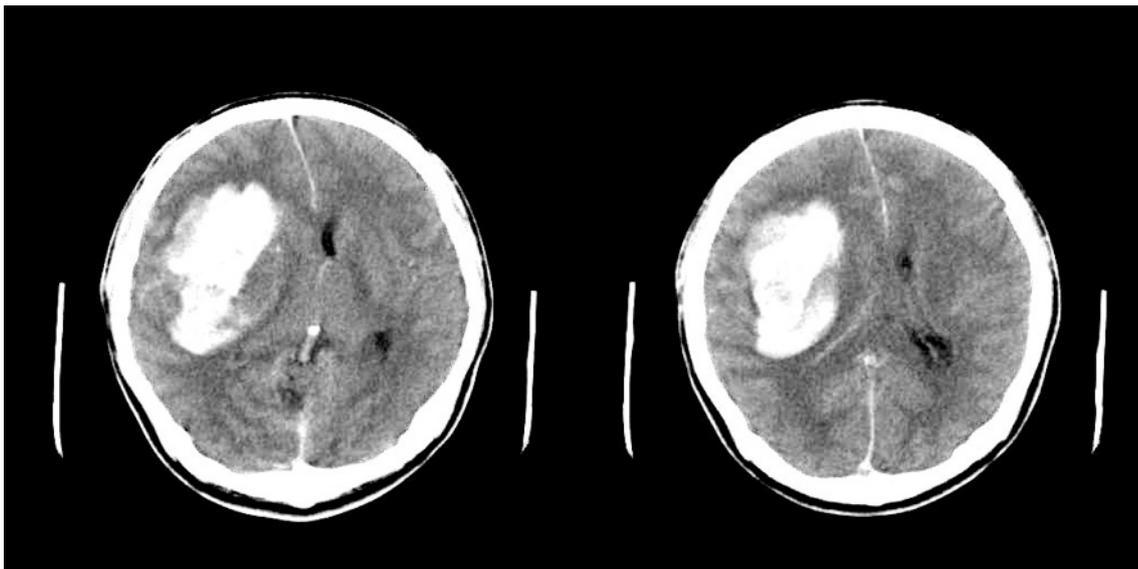


Fig. 3 血管撮影後CT

術後、意識状態は改善、左不全麻痺も独歩可能なまでに回復した。発症16日後の脳血管撮影では、動静脈シャント流量の減少と流速遅延を認めたが、依然シャントは残存していた。発症51日後、頭蓋形成術を行い、右MCA (M2)からの流入血管の部分焼灼を追加した。術後神経症状の悪化、新たな梗塞巣の出現は無かった。2回目の手術後100日の時点で行ったフォローアップの血管撮影では、シャントは減弱していた (Fig. 4)。

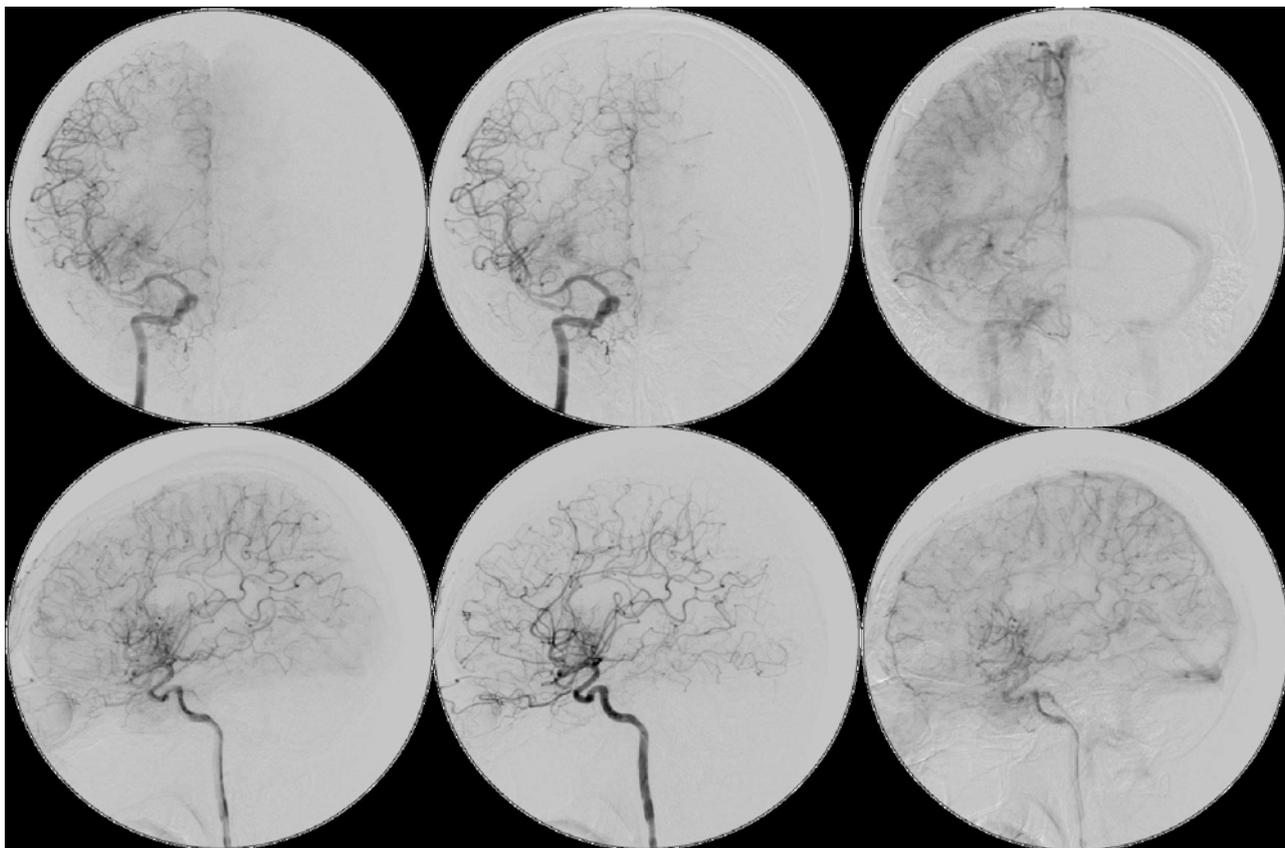


Fig. 4 脳血管撮影 (2回目手術後100日) 上段：前後像、下段：側面像 (動脈相早期、後期、静脈相早期)

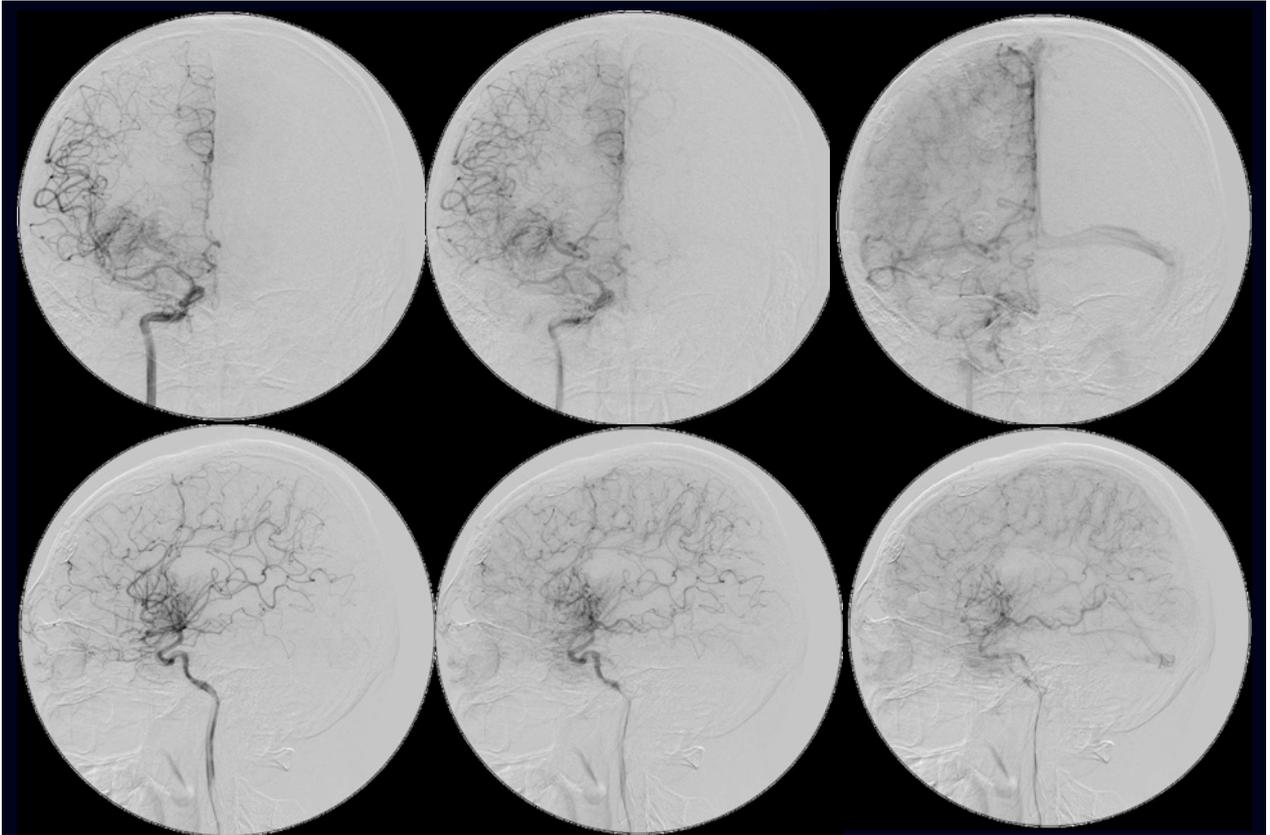


Fig. 5 脳血管撮影 (γナイフ後2年) 上段：前後像、下段：側面像 (動脈相早期、後期、静脈相早期)

発症より6ヵ月後、残存する病変に対しγナイフ治療 (境界線量50%, 20Gy) を行った。動脈成分を照射、VA本体は可能な限り照射範囲から外した。γナイフ治療後1年11ヵ月の時点でフォローアップの血管撮影を施行、VA with AV shuntは依然として存在しており、γナイフ前と比較し、大きな変化は無かった (Fig. 5)。経過中、再発作無く、現在、左上肢麻痺はあるものの、独歩可能でBarthel index は100点の状態 で推移している。

#### 【考察】

Venous angioma (VA)は、その成因に関し推測の域を出ない疾患であり、先天的要因の関与を示唆する developmental venous anomaly、medullary venous malformationといった別のterminology で呼ばれることもある。中でもAV shuntを有するVAは、その成因、自然歴、治療適応、治療方法に関し、さらに不明な点が多く、明らかなコンセンサスが得られていないのが現状と考える。

Komiyamaらは、自験例の3例を含む、文献上渉猟しえた31例について、系統だった詳細なreviewを行っており、諸家の考えを要約している。まず、成因に関して、Lasjauniasは、VAの静脈拡張は正常亜型であり、VA with AVSとVA without AVSには本質的な違いは無く、単にVAにおけるtransit timeの違いであろうと推測している。Huangらは、胎児期における静脈系の閉塞、再開通が原因であると考えており、静脈圧亢進が静脈にとどまればVA without AVS、毛細血管系もしくは細動脈を含めた動脈系に及べばVA with AVSの所見を呈するとしている。したがって、VA with AVSはAVMとVA without AVS (simple VA)の間に属する奇形であると考えられるものもある。VA with AVSとは異なるmedullary componentをもつAVMは、その鑑別点として、transit timeが速く、明らかに拡張したfeeding arteriesを有し、medullary component はwedge shapeを呈することを挙げている。またcavernoma、AVMと共存するVAの報告も散見され、病因に関して、何らかの共通点の存在が示唆される。

私的推論ではあるが、脳血管奇形のサブタイプは、それぞれ独立したentityではなく、静脈還流障害により、veinからvenule, capillary system, arteriole, arteryへ、逆向性に血管拡張が進展し、varix, VA, telangiectasia, cavernoma, AVMが発生し、故に、互いの移行型が存在するのではないかと考える。

VA with AVSの自然歴はVA without AVSと同様と唱えるものもあれば、よりaggressiveなことが多いとする報告もあり一定していない。VA with AVSが出血発症した場合、出血源が明らかに動脈側のaneurysm, AVMにあると考えられた場合、手術による動脈成分の処置もオプションとなりうるが、VA with AVSのvenous componentが出血源と考えられる場合は、通常のVA同様、正常静脈還流に関与している場合が多く、手術による病変摘出は重篤な脳梗塞、脳腫脹をきたす恐れがある。

病変の動脈成分のみの処置を目的としたγナイフ治療の報告も散見されるが、効果については一定の見解を得るに至っていない。

いずれにしても、本症例の病態が、AVMともsimple VAとも異なる疾患であるという概念を認識することが重要である。

## Reference

1. Komiyama M, et al: Venous angiomas with arteriovenous shunts. Report of three cases and review of the literature. Neurosurgery 44:1328-1335, 1999
2. Kurita H, et al: Successful radiosurgical treatment of arteriovenous malformation accompanied by venous malformation. AJNR 20:482-485, 1999