

症例報告

脳内出血を合併した翼突筋部動静脈奇形の
血管内治療例立嶋 智¹⁾ 秋山雅彦¹⁾ 長谷川譲¹⁾ 阿部俊昭²⁾Endovascular embolization of pterygoid arteriovenous malformation
presented with cerebral intraparenchymal hemorrhageSatoshi TATESHIMA¹⁾ Masahiko AKIYAMA¹⁾ Yuzuru HASEGAWA¹⁾ Toshiaki ABE²⁾

1) Neurological Surgery Service, Atsugi Municipal Hospital

2) Department of Neurosurgery, The Jikei University School of Medicine

●Abstract●

Objective: Arteriovenous malformations (AVM) of the maxillofacial region are rare. Here a case of pterygoid AVM is described.**Method:** A patient presented with a large hemorrhage in the left basal ganglia, and found to have an AVM in the left pterygoid region. The AVM was mainly fed by the left internal maxillary artery, and partially drained into the left cavernous sinus and inferior petrosal sinuses. There was no angiographic evidence, such as cortical venous reflux, suggesting the AVM caused the hemorrhage.**Results:** The AVM was completely obliterated by 2 sessions of endovascular embolization without complication. Although primarily a liquid embolic agent was used, platinum coils were also used in order to avoid ischemic cranial nerve palsy or non-target embolization across the dangerous anastomoses.**Conclusion:** Experience with this single case suggests that an extra-cranial/extra-dural AVM can induce retrograde venous reflux into the intracranial venous vasculature. Careful evaluation of angiograms and appropriate selection of embolic agents are required for successful embolization of a maxillofacial AVM.

●Key Words●

cerebral hemorrhage, embolization, endovascular, maxillary AVM, pterygoid

1) 厚木市立病院 脳神経外科

2) 東京慈恵会医科大学 脳神経外科

<連絡先: 立嶋 智 〒243-8588 神奈川県厚木市水引1-16-36 E-mail: stateshi@ucla.edu>

(Received January 25, 2008 : Accepted May 14, 2008)

緒言

脳や脊髄実質以外の頭頸部に発生する動静脈奇形 (arteriovenous malformation: AVM) の頻度は極めて低く、脳神経外科領域で治療の対象となる機会はほとんどない^{1,2,4,5,6,7)}。その解剖学的部位から上顎や下顎部の AVM の流入動脈は主に外頸動脈系の枝であり、流出静脈は外頸静脈系である。我々は高血圧の既往のない左被殻出血の病因検索中に発見された翼突筋部 AVM の症例を経験した。翼突筋部 AVM の流出静脈からの血流の一部は左海綿静脈洞へと逆流し、下錐体静脈洞から内頸静脈へと流出していた。我々の検索した限り、頭蓋外および硬膜外に存在する頭頸部領域 AVM の流出静脈経路として頭蓋内静脈系への逆流が認められた報告はない。脳

皮質静脈逆流など脳出血病因を強く示唆する所見は認めなかったが、その血流動態から翼突筋部 AVM が遠隔部である脳実質内の出血に関与した可能性を完全には否定できない。複雑な解剖の頭蓋底部に位置する血管奇形の塞栓術を行ううえで、各血管に対して使用する塞栓物質の選択を誤ると、脳神経麻痺や予期せぬ脳塞栓などの合併症を起こす危険性がある。本症例は血管内治療によって合併症なく AVM を完全閉塞しえた。頭頸部の AVM に対する治療法および本例における文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

患者: 46歳男性

主訴: 右片麻痺, 意識障害

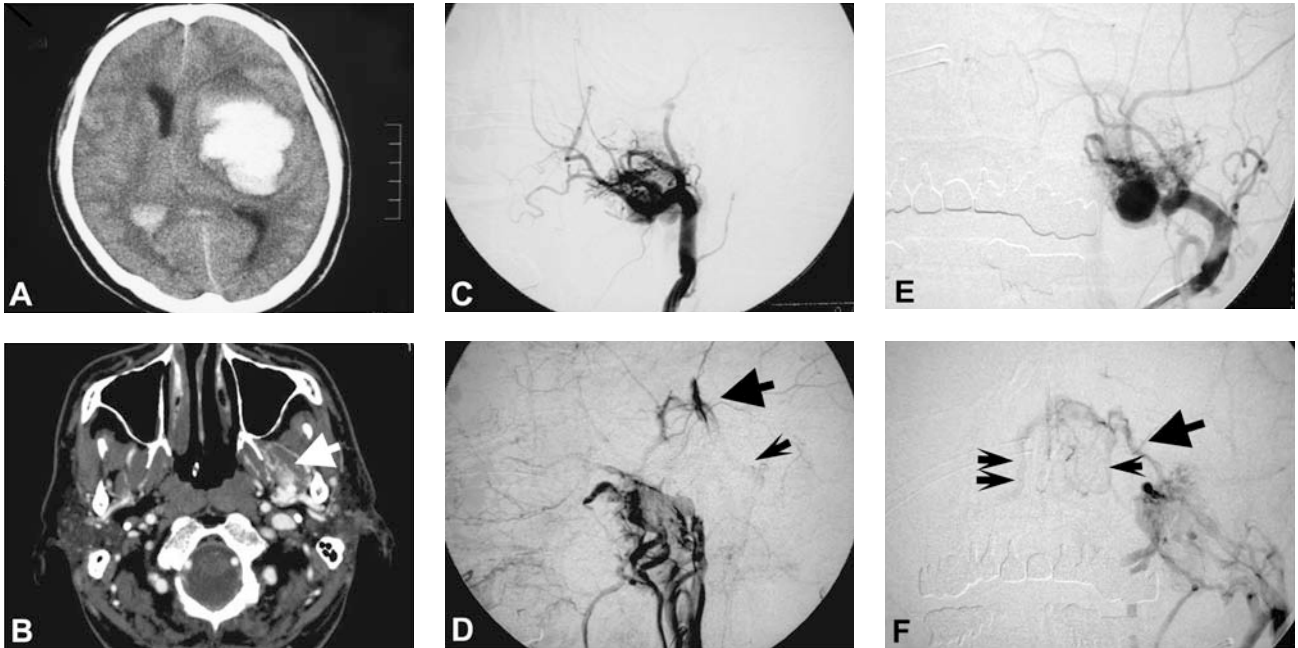


Fig. 1

- A : Initial brain CT shows large left basal ganglia hemorrhage.
 B : Contrast-enhanced CT shows enlarged vessels within the left pterygoid muscles (white arrow).
 C : Selective angiography of the left external carotid artery, early arterial phase, lateral view, demonstrates the left pterygoid AVM fed by the left internal maxillary artery.
 D : Selective left external carotid artery angiography, venous phase, lateral view, shows pterygoid venous plexus, and venous reflux into the left cavernous sinus (large arrow) and the inferior petrosal sinus (small arrow).
 E : Left external carotid artery angiography, arterial phase, antero-posterior view, shows the left pterygoid AVM supra-medial to the main trunk of the enlarged left internal maxillary artery.
 F : Left external carotid artery angiography, venous phase, antero-posterior view, shows venous reflux into the left cavernous sinus via the left foramen ovale (large arrow), with the flow drained to the left (small single arrow) and right (small double arrows) inferior petrosal sinuses.

現病歴：2004年8月12日に意識障害と右片麻痺にて当院急患室へ救急搬送され、頭脳CTにて左被殻出血を認めた (Fig. 1A)。既往歴に高血圧、糖尿病、低コレステロール血症等の脳出血に関わる素因がなく、年齢も比較的若いことから、脳内のAVMを否定する目的にて同日に頭脳血管撮影施行した (Fig. 1B-F)。頭蓋内に異常所見を認めなかったが、左顎動脈を流入動脈とする翼突筋部AVMを認めた。AVMは左内側翼突筋の後内側部に接するように位置しており、一部拡張した流出静脈瘤は内側翼突筋に埋没していた (Fig. 1B)。主な流出静脈は翼突筋静脈叢を含む外頸静脈系であるが、左海綿静脈洞後部から下錐体静脈が逆行性に描出された (Fig. 1D, F)。左内頸動脈撮影では左海綿静脈洞が順行性に造影され、脳底静脈、中大脳静脈、鉤静脈などへの明らかな皮質静脈逆流や静脈うっ血などの翼突筋部AVMと脳出血との直接的な因果関係を示唆する所見は認めなかった。

入院経過：入院後は保存的治療にもかかわらず意識レベルがさらに悪化した。生命予後および機能予後が極めて

不良であることを家族に説明し、救命目的にて緊急血腫除去および減圧開頭術を行った。術後10日目頃より意識レベルが著明に改善し、離握手などの簡単な指示が通るようになった。血管造影上は脳出血とAVMとの直接的な因果関係は示されなかったが、海綿静脈洞への逆流を伴っていることから、AVMの脳深部微小循環における静脈還流への影響などが関与している可能性などを完全には否定できないことから、塞栓術を施行することになった。

血管内手術所見 (初回)：手術は全身麻酔下に行われた。血管撮影所見では左顎動脈からの枝である翼突筋動脈や頬動脈がAVM流入動脈となっていた。また小さなen-passage feederが顎動脈の本幹、中硬膜動脈、副硬膜動脈、卵円孔動脈から出ていた。頭蓋底部の豊富な側副血行路を考慮すると、1回の塞栓術でAVMが完全閉塞に至る可能性は低いと考えた。また、顔面神経などの脳神経麻痺を避けるために液体塞栓物質の使用を控えるべき枝が存在することから、血管内治療だけではAVM自体が完

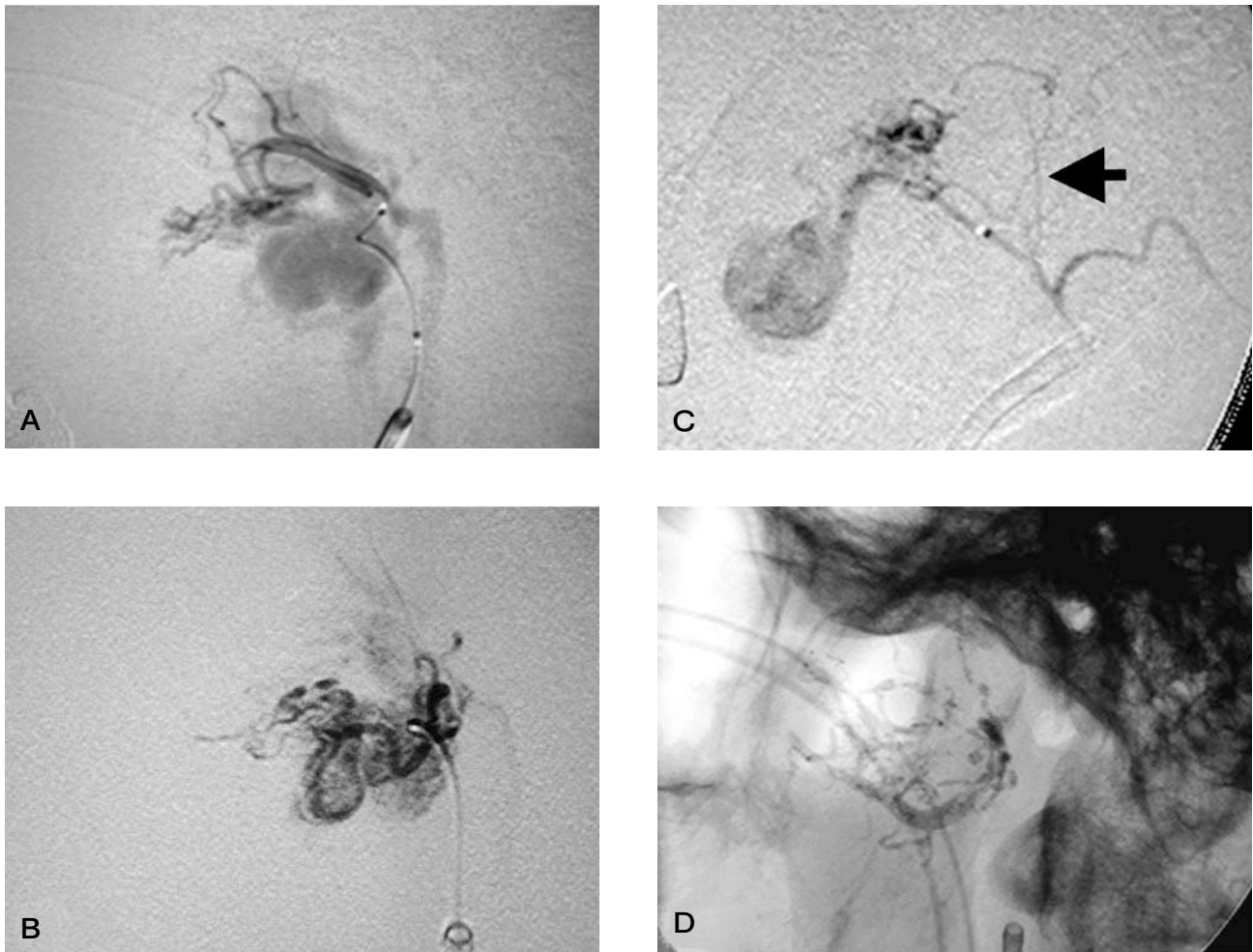


Fig. 2

- A** : Super selective angiogram prior to an NBCA injection shows a major feeding artery of the AVM and draining veins. There is a varix in the draining system.
- B** : Super selective angiogram of another feeding artery shows a nidus-like structure and draining veins.
- C** : Super selective angiogram of a feeding artery arising from the left posterior auricular artery shows the left styломastoid artery (black arrow) arising from the same pedicle.
- D** : Lateral view of fluoroscopic image after the initial embolization shows a glue-cast in the AVM and its feeders.

全閉塞できない可能性もあると考え、最初の塞栓術は海綿静脈洞への逆流の消失を目標とした。

右大腿動脈アプローチにて、5Frガイドイングカテーテルを拡張した左頸動脈に留置し、マイクロカテーテル Excelcior SL-10 (Boston Scientific, Massachusetts, USA) を比較的大きなfeederに進めた。同feederからの超選択的血管撮影ではナイダス様の血管を介して流出静脈が描出された (Fig. 2A, B)。外頸-内頸動脈の潜在的吻合に留意して塞栓術を行った。マイクロカテーテル内を5%グルコースで十分にフラッシュした後、Nブチルシアノアクリレート (NBCA) ・リピオドール混和液 (流入動脈の流速に応じて33-50%に希釈) を注入しAVMの塞栓を行った。棘孔より近位で中硬膜動脈から分岐する

feederの塞栓に際しては、事前に中硬膜動脈を棘孔の高さでコイル塞栓し、顔面神経膝神経節への微小血管や外頸-内頸動脈系の吻合にNBCAが流入の事を防ぐようにした。また、頸動脈の枝である正円孔動脈が分岐する近傍の塞栓では内頸動脈との吻合に注意し、事前に正円孔動脈近傍をコイルにて塞栓して、予期しないNBCAの内頸動脈系への流入の危険性を最小限にするようにした。合計5本のfeederから塞栓術を行い、AVMの約90%が塞栓された。これら主流入動脈塞栓後の血管造影にて、茎乳突孔動脈より分岐する小さな流入動脈からのAVMへの供血が認められた (Fig. 2C)。フローガイドタイプのマイクロカテーテル Magic H 1.5Fr (Balt, Montmorency, France) とマイクロガイドワイヤー Mirage 0.008 (ev3

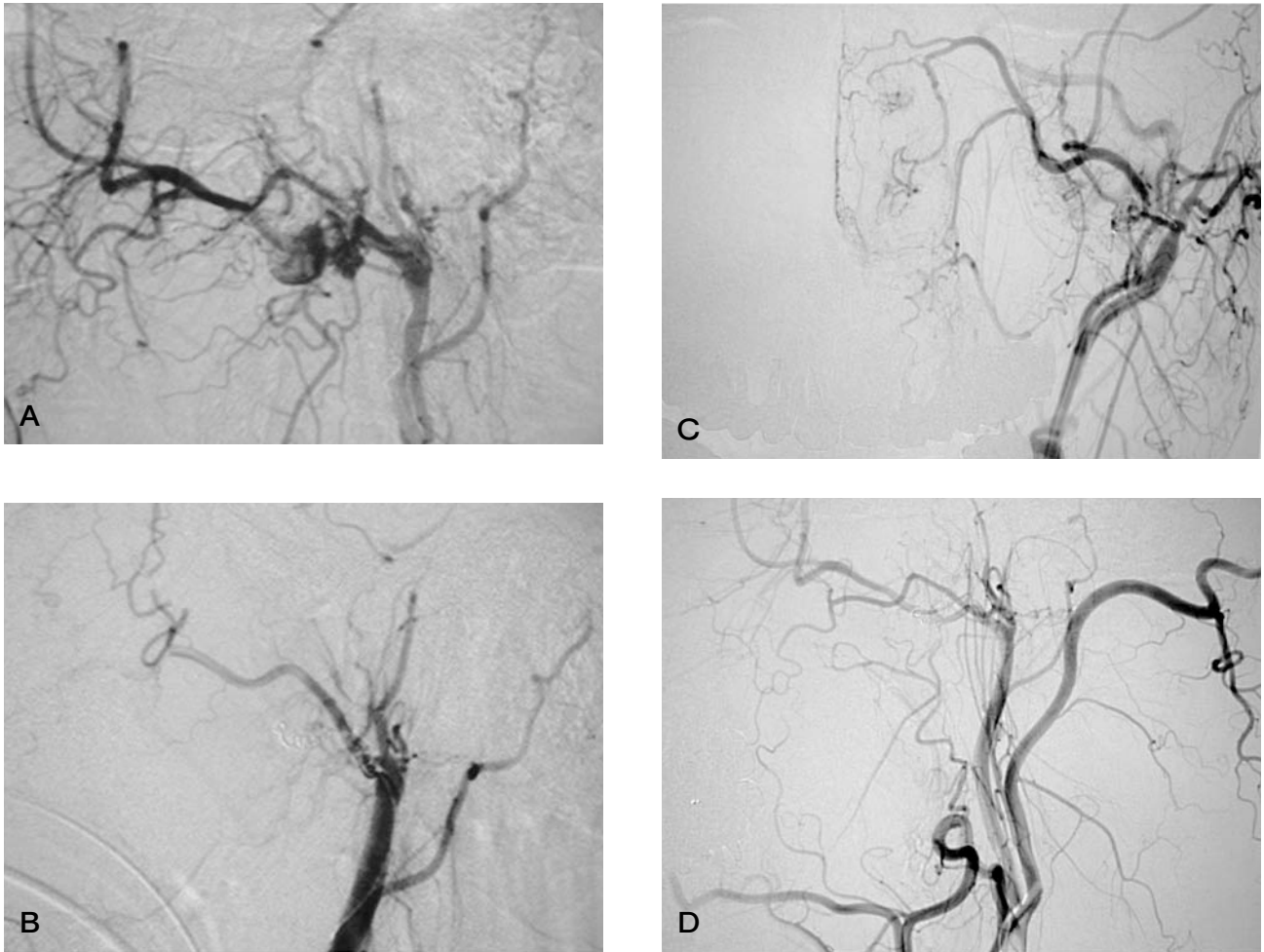


Fig. 3

- A : Followup left external carotid artery angiogram 5 months after the initial embolization (lateral view) demonstrates interval recanalization of the AVM. The venous reflux into the left cavernous sinus is no longer evident.
- B : Selective left external carotid artery angiogram immediately after the second embolization (lateral view) shows near complete obliteration of the AVM.
- C, D : Followup angiography 3 months after the second embolization, anteroposterior view (C) and lateral view (D), shows disappearance of the AVM.

Neurovascular, California, USA) を茎乳突孔動脈から出るfeederに進めた。末梢性顔面神経麻痺の危険性を考慮し、液体塞栓物質は使用せず、リキッドコイル (Boston Scientific, Massachusetts, USA) にて同枝を塞栓した。この時点で左海綿静脈洞への造影剤の逆流も完全に消失していたことから、1回目の塞栓術を終了した (Fig. 2D)。

術後経過：血管内手術による脳神経麻痺などの合併症は認めなかったが、脳出血による右片麻痺および運動性失語のため、リハビリテーションセンターへ転院となった。約半年後に当院脳神経外科外来を受診し、残存AVMの再評価と再治療目的にて当院に再入院となった。

血管内手術所見 (2回目)：手術は全身麻酔下に行われ

た。左外頸動脈撮影ではAVMの再開通を認めたが、その流速は遅く、頭蓋内静脈系の逆流は消失していた (Fig. 3A)。マイクロカテーテル Excelcior SL-10 (Boston Scientific, Massachusetts, USA) を上顎動脈から出る流入動脈に進め、Guglielmi Detachable Coil (Boston Scientific, Massachusetts, USA) と50%NBCAを用いて塞栓した。塞栓術後の選択的外頸動脈撮影では下歯槽動脈よりわずかな残存AVMが造影されたが、著明な造影剤の停滞が認められたことから、さらなる血栓化を期待して手技を終了した (Fig. 3B)。

退院経過：2回目の血管内治療後も脳神経麻痺などの合併症を認めず、外来にて経過観察を継続した。血管内治療後3ヵ月目に行った血管撮影ではAVMの消失を認め

た (Fig. 3C, D).

考 察

脳実質以外の頭蓋底や上下顎部に発生するAVMは稀な疾患で、抜歯などの歯科治療や外傷によって致命的な出血を起こすことが知られており、口腔外科領域からの症例報告が散見される^{1,2,4,5,6}。その結果、上顎や下顎部に限局したAVM病変の報告が多く、美容上の観点からも複数の科が協力した体制で段階的な治療が必要となることが多い^{2,5}。最近では血管内手術や直接穿刺による塞栓術などの治療を勧める報告がある^{2,7}。しかし、本症例のように翼突筋部に限局し、内頸動脈系との吻合 (dangerous anastomosis) を有する動脈が流入動脈となっている症例では予期せぬ脳塞栓を起こす危険性があることから、直接穿刺による安易な塞栓術を行うべきではない。また、同部位は動脈間の吻合が多く、側副血行路が瞬時に形成されることから、流入動脈の近位部を塞栓するような消極的な治療を行っても無意味な結果に終わることが考えられる。そればかりか、近位部での不十分な塞栓は再開通後の血管内治療を困難または不可能にしかねない。したがって頭蓋底部の脳神経や血管解剖などを十分に検討したうえで治療戦略をたて、実際の塞栓術にあたる必要があると思われる。本例では、顔面神経麻痺を起こす可能性のある枝 (茎乳突孔動脈など) でコイルを用いた塞栓を行った以外、液体塞栓物質 (NBCA) を用いて積極的にナイダス様血管の塞栓をするように努めた。

頭頸部AVMの塞栓術における他のアプローチとして、経静脈的塞栓術の報告も見られる。経静脈的塞栓術は静脈洞部硬膜動静脈瘻と同様に単一の流出路に流入するようなタイプのAVMには有用であると思われるが、本症例ではナイダス様の血管を介して複数の静脈が流出路になっていたことから経静脈的塞栓術での根治は困難と判断し経動脈的塞栓術を選択した。また、他の治療法として定位放射線治療もあげられる。本例においては、脳出血との因果関係が完全に否定できず、かつ頭蓋内静脈系への逆流を認めていることから、治療効果発現に時間がかかる定位放射線治療は選択しなかったが、血管内治療にて残存する場合には追加治療として考慮すべきである。

本症例は高血圧症の既往のない比較的若い症例の脳出血であったために、脳実質のAVMを疑い緊急血管撮影を行った。その結果、翼突部AVMから左海綿静脈洞へ

静脈逆流を認めたが、脳皮質静脈への逆流の所見は認めなかったことから、AVMと脳出血との直接の因果関係を証明する確証は得られなかった。頭蓋底部の硬膜外に存在するAVMが脳実質も含めた頭蓋内出血にて発症したという報告は筆者の知る限り存在しない。病因は異なるが、海綿静脈洞部の硬膜動静脈瘻において静脈高血圧から脳出血を発症したという報告も散見されることから、翼突部を含む硬膜外の頭頸部AVMからの血流が海綿静脈洞から皮質静脈などに逆流することで、脳出血などの中樞神経症状を起こす可能性もあると考えられる^{3,8,9}。歯科治療の妨げになる場合や美容上目的で治療されることがある頭頸部AVMだが、稀に静脈流出路として頭蓋内静脈系への逆流が形成される可能性があることを考慮するべきである。

結 語

左被殻出血の病因検索中に発見された翼突筋部AVMの症例を経験した。翼突筋部AVMからの血流の一部は左海綿静脈洞から左下錐体静脈洞に逆流していた。稀ではあるが、頭蓋外および硬膜外に存在する頭頸部領域AVMの流出静脈経路として、頭蓋内静脈系への逆流が形成される可能性があることが示された。脳神経の栄養血管や内頸-外頸動脈の潜在的吻合に留意してAVMの塞栓術を行い、合併症なく完全閉塞することができた。頭頸部領域動静脈奇形の血管内治療においては頭蓋底部の血管解剖を理解した上で血管撮影を読影し、必要に応じて塞栓物質を使い分け、慎重に塞栓を行う必要がある。

文 献

- 1) Engel JD, Supancic JS, Davis LF: Arteriovenous malformation of the mandible: life-threatening complications during tooth extraction. *J Am Dent Assoc* 126:237-242, 1995.
- 2) Kademani D, Costello BJ, Ditty D, et al: An alternative approach to maxillofacial arteriovenous malformations with transosseous direct puncture embolization. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 97:701-706, 2004.
- 3) Kuwayama N, Endo S, Kitabayashi M, et al: Surgical transvenous embolization of a cortically draining carotid cavernous fistula via a vein of the Sylvian fissure. *AJNR* 19:1329-1332, 1998.
- 4) Mehra P, Gagari E, Papageorge MB: Arterio-venous fistula of the internal maxillary artery. A clinicopathologic presentation. *J Mass Dent Soc* 49:52-53,

- 2000.
- 5) Persky MS, Yoo HJ, Berenstein A: Management of vascular malformations of the mandible and maxilla. Laryngoscope 113:1885-1892, 2003.
 - 6) Rodesch G, Soupre V, Vazquez MP, et al: Arteriovenous malformations of the dental arcades: The place of endovascular therapy: results in 12 cases are presented. J Craniomaxillofac Surg 26:306-313, 1998.
 - 7) Siu W, Weill A, Garipey JL, et al: Arteriovenous malformation of the mandible: embolization and direct injection therapy. J Vasc Interv Radiol 12:1095-1098, 2001.
 - 8) 高沢弘樹, 久保道也, 桑山直也, 他: 脳出血で発症した海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例. No Shinkei Geka 33:143-147, 2005.
 - 9) van Dijk JM, TerBrugge KG, Willinsky RA, et al: Clinical course of cranial dural arteriovenous fistulas with long-term persistent cortical venous reflux. Stroke

JNET 2:139-144, 2008

要 旨

【目的】 稀な疾患である翼突筋部動静脈奇形の症例を経験したので、その治療経過を報告する。【方法】 左被殻出血の病因検索中、主に顎動脈を流入動脈とする左翼突筋部動静脈奇形を認めた。血管撮影では左海綿静脈洞および左下錐体静脈洞が流出路の一部となっていたが、皮質静脈への逆流など、動静脈奇形が脳出血の病因であると強く示唆する所見はなかった。【結果】 2回にわたる血管内塞栓術を行い、動静脈奇形を完全閉塞しえた。塞栓に際しては脳神経の栄養血管や内頸-外頸動脈の潜在的吻合に留意し、必要に応じて液体塞栓物質とコイルを使い分けることで合併症を避けることができた。【結論】 頭蓋外、硬膜外に存在する頭頸部領域動静脈奇形の流出路として頭蓋内静脈系への逆行性流出路が形成されることがある。頭頸部領域動静脈奇形の血管内治療においては、頭蓋底部の血管解剖を理解したうえで血管撮影を撮影し、慎重に塞栓を行う必要がある。