

巨大脳動静脈奇形の摘出術における術直後 脳血管造影に出現する perinidal hypervascular network pattern

竹前紀樹¹⁾²⁾

1) 信州大学医学部附属病院救急部

2) 信州大学医学部脳神経外科学教室

Immediate Postoperative Angiogram after Removal of Large Arteriovenous Malformations with Special Reference to Perinidal Hypervascular Network Pattern

Toshiki TAKEMAE¹⁾²⁾

1) *Department of Emergency Medicine, Shinshu University Hospital*

2) *Department of Neurosurgery, Shinshu University School of Medicine*

Of the 157 cases with arteriovenous malformation (AVM) operated on in our clinic, 25 cases were large with maximum diameter greater than 5 cm. In 5 of these intra- or postoperative hemorrhage of unknown etiology occurred after removal of the AVM. One possible explanation of the hemorrhage is hemodynamic change induced by obliteration of arteriovenous shunts. To clarify this question, postoperative angiography was performed within 24 hours after surgical removal of AVM in 48 patients, including 12 large AVMs and 36 small AVMs. Detailed analysis was made of the 12 large AVMs, 4 cases of which were complicated by such hemorrhage. A hypervascular network pattern was noted in the vicinity of the removed nidus (perinidal hypervascular network pattern) in 5 of 6 large AVMs located in the distal cerebral hemisphere on the immediate postoperative angiogram. In 4 of these 5, the above mentioned hemorrhage occurred. In the remaining 6 large AVMs (5 located close to the arterial circle of Willis and 1 in the cerebellum) and in all 36 small AVMs except one, no perinidal hypervascular network pattern was recognized; these 6 large AVMs and all small AVMs did not develop hemorrhage. The author believes that the perinidal hypervascular network pattern seen on the immediate postoperative angiogram after surgical removal of a large distal AVM is an important finding which is often associated with development of intra- or postoperative hemorrhage. It is proposed that we call this perinidal hypervascular network pattern "modja-modja vessels" as it resembles shaggy hair. *Shinshu Med J 41: 103-114, 1993*

(Received for publication January 25, 1993)

Key words: arteriovenous malformation, normal perfusion pressure breakthrough, postoperative cerebral angiography, perinidal hypervascular network pattern, moyamoya vessels

脳動静脈奇形, 正常灌流圧破綻, 術後脳血管造影, 異常血管網, モヤモヤ血管

I はじめに

1970年代の終わり頃より, 大きい脳動静脈奇形 (arteriovenous malformation, AVM と略す) の中

に, その摘出術中・術後に原因不明の頭蓋内異常出血を起こすものが含まれることが注目されてきた。これらの異常出血の病態は normal perfusion pressure breakthrough¹⁾, sump effect²⁾, hyperemic problem³⁾,

circulatory breakthrough⁴⁾, hyperemic complication⁵⁾, overload phenomenon⁶⁾, pressure breakthrough⁸⁾などと呼ばれている。

異常出血の原因は、手術手技の拙劣さや残存 nidus からの出血とは考えがたく、むしろ、AVM 摘出術における動静脈シャントの閉塞により生ずる急激な血行動態あるいは脳循環動態の変化によるものと考えられている。このような術中・術後の原因不明の異常出血の危険因子として数多くのものが指摘されてきたが⁴⁾⁵⁾⁷⁾、それらの中で共通した因子は大きな AVM であった。

さまざまな方法を用いてこの異常出血の原因や治療に関する研究が行われているが、大きな AVM の摘出例が少ないこと、また術後集中治療室での管理が必要で脳血管造影を行うことが難しいなどの理由で、AVM 摘出術直後の脳血管造影を用いてこの異常出血の病態を研究した報告はきわめて少ない⁹⁾。

筆者は、異常出血の原因として AVM 摘出術直後の脳血管造影像で nidus を摘出した周囲に出現する perinidal hypervascular network pattern (perinidal hypervascular network 像) に注目した。

この論文では、AVM の摘出術直後に脳血管造影を行った症例を対象として、perinidal hypervascular network 像の出現、術中・術後の異常出血の発生、AVM の大きさと局在との関係を調べ、症例を呈示するとともに perinidal hypervascular network 像の特徴を述べ、その出現機序や意義について考察する。

II 対象および方法

1979年から1991年の間、信州大学病院および関連病院において巨大 AVM (nidus の最大径が 5 cm 以上のもの²⁾) 25例、nidus の最大径が 5 cm 未満の AVM 132例の計157例の AVM 摘出術を行った。157例のうち、AVM 摘出術後24時間以内に行った脳血管造影で、nidus および動静脈シャントを認めなかった48例を対象とした。48例中巨大 AVM は12例で、5 cm 未満の AVM は36例であった。

AVM はその局在により、Willis 動脈輪より遠く離れた前頭葉、頭頂葉、あるいは後頭葉に存在するものを遠位部 AVM とし、側頭葉、シルビウス裂近傍、基底核、脳幹、小脳に存在するものを近位部 AVM と分類した。

対象例の48例中巨大 AVM の局在は遠位部が 6 例、近位部が 6 例で (Table 1)、5 cm 未満の AVM の局

Table 1

	Age	Sex	Location of AVM	Size of AVM (cm)
1	44	F	Distant, Cerebral	8×4×3
2	44	F	Distant, Cerebral	6×6×4
3	37	M	Distant, Cerebral	5×4×3.5
4	38	M	Distant, Cerebral	8×7×3.5
5	48	M	Distant, Cerebral	5×4×3
6	48	M	Distant, Cerebral	5×5×3.5
7	25	F	Close, Cerebral	5×4×3
8	18	F	Close, Cerebral	5×4×3
9	29	M	Close, Cerebral	5×4×4
10	3	F	Close, Cerebral	9×4×1
11	43	F	Close, Cerebral	5×3×2.5
12	22	M	Close, Cerebellar	6×5×4.5

Distant : AVM located distant from the circle of Willis

Close : AVM located close to the circle of Willis

在は遠位部16例、近位部20例であった。

手術は、手術用顕微鏡下に nidus を周辺脳組織から剝離して、多数の流入動脈を閉塞切離しながら最後に導出静脈を切離して nidus の摘出を行った。数回にわけて手術を行う staged operation は巨大 AVM では12例中6例に、5 cm 未満の AVM では36例のうち8例に行った。

術後の脳血管造影は、AVM の摘出術後24時間以内に (staged operation を行った場合は、最後の AVM 摘出術後24時間以内に) セルジンガー法により行い、perinidal hypervascular network 像の出現の有無を検討した。造影剤の注入量、注入速度、撮影間隔などの条件は一定とした。術直後の脳血管造影像で perinidal hypervascular network 像が認められた例では、最初の1カ月は1週ごとにくり返し脳血管造影を行った。また全例に、退院直前に AVM が残っていないことを再確認するための脳血管造影を行った。

さらに perinidal hypervascular network 像の出現、異常出血の発生、AVM の局在と大きさについての相互関係を検討した。統計的処理は、イエーツの修正式を用いたカイ二乗テストを使用した。

Perinidal hypervascular network 像とは、AVM 摘出術直後の脳血管造影で毛細血管相から静脈相にかけて、nidus を摘出した周囲に出現する異常な hypervascular network pattern である。これを構成する血管は、一部は造影剤が停滞した動脈 (stagnant

Summary of 12 large AVMs

Clinical Presentation	Staged-Operation	Intra- or postoperative Hemorrhage	Perinidal Hypervascular Network Pattern	Outcome
Seizure	Multi-staged	Yes, Intraoperative	Yes	Excellent
Hemorrhage	Multi-staged	Yes, Postoperative, Day4	Yes	Poor
Headache	One-staged	Yes, Intraoperative	Yes	Excellent
Hemorrhage	Multi-staged	Yes, Intraoperative	Yes	Fair
Seizure	One-staged	No	Yes	Fair
Ruptured Aneurysm	Multi-staged	No	No	Good
Seizure	One-staged	No	No	Excellent
TIA	One-staged	No	No	Excellent
Hemorrhage	One-staged	No	No	Fair
Hemorrhage	Multi-staged	No	No	Good
Hemorrhage	One-staged	No	No	Excellent
Hemorrhage	Multi-staged	No	No	Excellent

TIA : Transient Ischemic Attack

AVM : Arteriovenous malformation

artery) であるが、そのほかは血管影の太さや走行が不規則で、動脈か静脈か、あるいは毛細血管かの判別が困難な血管が集まった異常血管網である。

III 結 果

巨大 AVM の12例および nidus の最大径が 5 cm 未満の AVM の36例全例において、退院時の脳血管造影像で、nidus および動静脈シャントの像が消失しており、AVM の摘出術が完全に行われていることが確認された。

巨大 AVM の12例のうち、遠位部 AVM の 6 例中 5 例に術直後の脳血管造影像で perinidal hypervascular network 像が認められた。この 5 例中 4 例に原因不明の頭蓋内異常出血（術中出血 3 例、術後出血 1 例）が発生した（Table 1）。近位部 AVM 6 例では、術直後の脳血管造影像で、perinidal hypervascular network 像は認められず、また異常出血も発生しなかった。

Perinidal hypervascular network 像の出現と異常出血との間、また perinidal hypervascular network 像の出現と AVM の局在（近位部対遠位部）の間には有意な関連があり（それぞれ $P < 0.05$, $P < 0.02$ ）（Table 2a, b）、perinidal hypervascular network 像は、異常出血例および遠位部 AVM 例に出現しやすい。

経時的に脳血管造影をくり返してみると、perinidal hypervascular network 像は 5 例とも 1 週から 2 週位

Table 2a Relationship between perinidal hypervascular network pattern and intra- or postoperative hemorrhage in 12 large AVMs

Perinidal hypervascular network pattern	Intra- or postoperative hemorrhage		Total cases
	Yes	No	
Present	4	1	5
Absent	0	7	7
Total cases	4	8	12

Table 2b Relationship between perinidal hypervascular network pattern and location of the AVM in 12 large AVMs

Perinidal hypervascular network pattern	Location of AVMs		Total cases
	distant	close	
Present	5	0	5
Absent	1	6	7
Total cases	6	6	12

で消失したが、stagnant artery の消失はこれより遅く 1 から 2 カ月前後であった。またこの時期の脳血管造影像の所見では、stagnant artery には造影剤の停滞も認められず、その径もほぼ正常範囲に戻っていた。

巨大 AVM 摘出直後の脳血管造影像のその他の所見

Table 3a Relationship between perinidal hypervascular network pattern and intra- or postoperative hemorrhage in all 48 AVMs

Perinidal hypervascular network pattern	Intra- or postoperative hemorrhage		Total cases
	Yes	No	
Present	4	2	6
Absent	0	42	42
Total cases	4	44	48

Table 3b Relationship between perinidal hypervascular network pattern and location of the AVM in all 48 AVMs

Perinidal hypervascular network pattern	Location of AVMs		Total cases
	distant	close	
Present	6	0	6
Absent	16	26	42
Total cases	22	26	48

としては、遠位部 AVM では全例に、近位部 AVM では 4 例に種々の長さの stagnant artery が認められた。また術前の脳血管造影で造影されていなかった前、中および後大脳動脈などの太い動脈が、摘出直後に造影されるようになった例や、Willis 動脈輪を介して対側の脳血管が造影されるようになった例など、血行動態の変化を示す所見が 12 例全例に認められた。

次に、nidus の最大径が 5 cm 未満の AVM 36 例についてみると、術中・術後に異常出血を起こした例は 1 例もなく、巨大 AVM の摘出術の際の異常出血の発生 (12 例中 4 例) に比べて有意に少なかった ($P < 0.01$)。Perinidal hypervascular network 像は遠位部 AVM の 1 例のみに認められたが、1 週後の脳血管造

影像では消失していた。

さらに、48 例全例をみると、巨大 AVM の場合と同じく、perinidal hypervascular network 像は、異常出血例および遠位部 AVM 例に出現しやすかった (それぞれ $P < 0.001$, $P < 0.02$) (Table 3a, b)。全症例中、術中・術後に異常出血を起こしたものは全て巨大かつ遠位部の AVM であった。

IV 症例呈示

A 症例 1, 44 歳女性

入院 3 カ月前に、右下肢より始まるジャクソンけいれん発作で発症した。血圧は正常範囲で、けいれん発作やクモ膜下出血の既往はなく、入院時に神経学的には明らかな異常を認めなかった。

入院時の脳血管造影像にて、約 $8 \times 4 \times 3$ cm の巨大 AVM が左遠位部前頭葉に認められ (Fig. 1a, b)、左中大脳動脈と左右前大脳動脈が流入動脈となっていた。導出静脈は 2 本の上矢状静脈洞へ向かう脳表静脈と Labbe 静脈であった。AVM の他に、右内頸動脈、左右の前大脳動脈に計 3 個の未破裂脳動脈瘤を合併していた。

初回の手術では、右前頭側頭開頭術を行い、上述の 3 個の動脈瘤の頸部クリッピング術と AVM の流入動脈である左前大脳動脈の分枝の閉塞を行った。初回手術後は特に神経症状の悪化もなく順調に経過した。術後 44 日に行った脳血管造影では、脳動脈瘤は閉塞され、AVM の nidus の出現は初回時より少し遅くなったが、その大きさは術前と変わりなかった。

2 回目の手術は、初回手術後 47 日に施行された。Nidus を周辺脳組織から剝離する操作は順調に行われた。しかし、nidus 全周が剝離され、nidus と太い最後の 1 本の導出静脈を残すのみとなった時点で、特に誘因なく、急に剝離面から出血が起こり脳腫脹が出現してきた。出血は、凝固切離した流入動脈の断端も含め剝離面などから発生し、剝離面の近くの皮質下には

Fig. 2 Case 1. Immediate postoperative left carotid angiograms (lateral view). (a) arterial phase. (b) venous phase. Note that contrast material remains in arteries (stagnant arteries, arrows) and a hypervascular network pattern around the removed nidus (perinidal hypervascular network pattern) is seen in the area surrounded by the frame. (c) higher magnification of the framed area in (b). Note that the perinidal hypervascular network pattern is composed of tortuous vessels of varied calibers.

Fig. 3 Case 1. Repeat left carotid angiograms (lateral view) taken on the 7th postoperative day. (a) arterial phase. (b) venous phase. Note that stagnant arteries persist (arrows), while the perinidal hypervascular network pattern is less distinct. (c) higher magnification of (b), showing some remnant of the perinidal hypervascular network pattern.

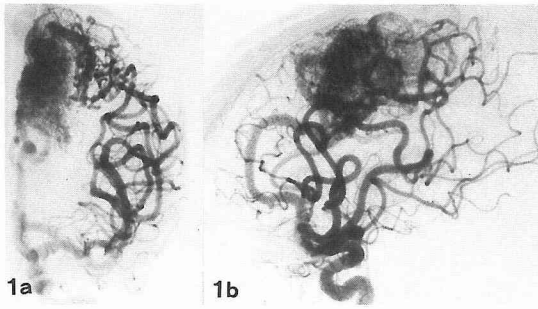
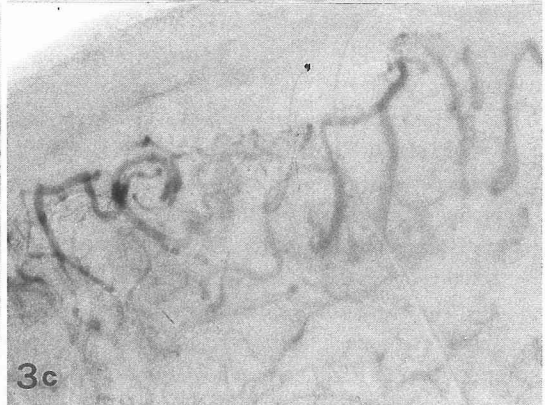
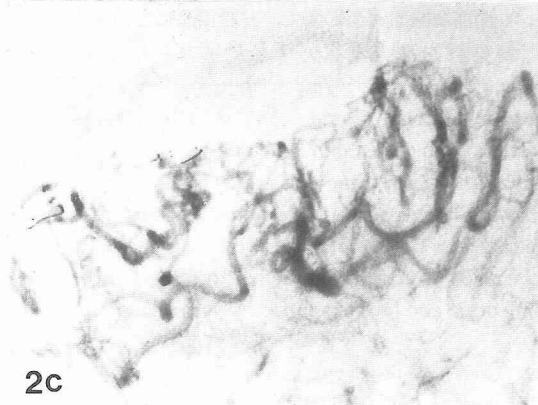
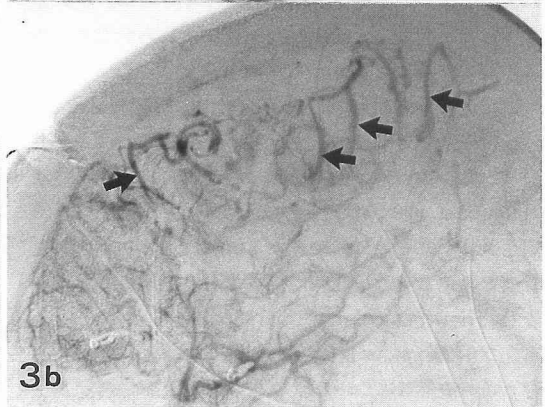
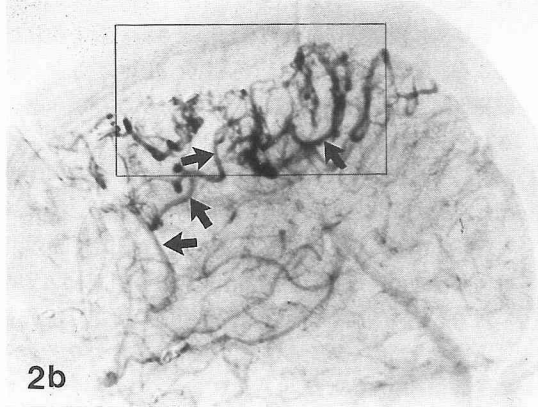
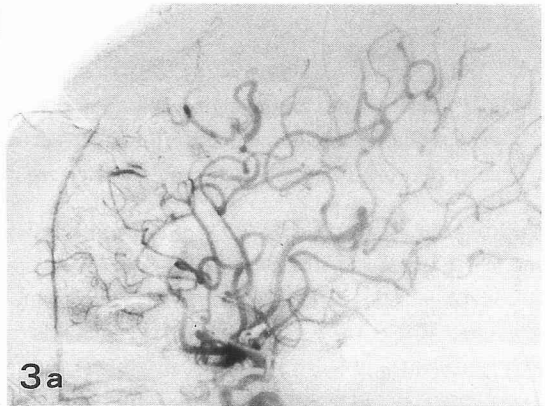
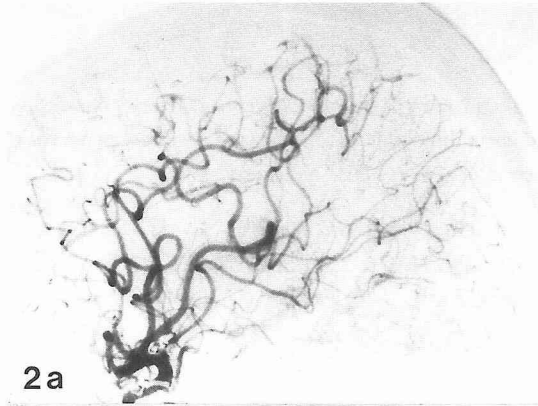


Fig. 1 Case 1. Preoperative left carotid angiograms, showing a large AVM in the left distal frontal lobe. (a) anteroposterior view. (b) lateral view.



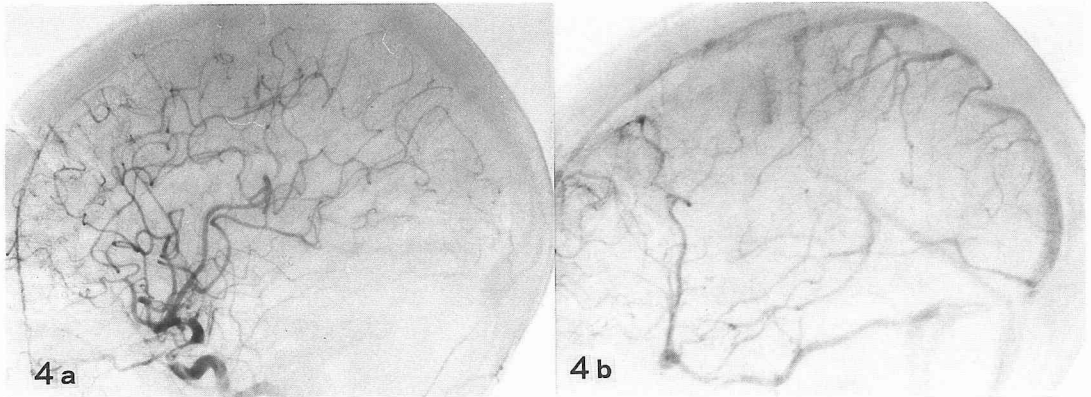


Fig. 4 Case 1. Left carotid angiograms (lateral view) taken 2 months postoperatively. (a) arterial phase. (b) venous phase. Note normal caliber of the vessels and normal blood flow. Neither the perinidal hypervascular network pattern nor stagnant arteries are discernible. No residual nidus is visible.

脳内出血も合併した。直ちにサイオペンタール1,000 mgを静注し、低血圧麻酔下に脳内血腫を除去し、オキシセルロース綿、双極凝固にて止血を行いnidusを摘出した。術後バルビタール療法で全身血圧を収縮期血圧で100mmHg以下に5日間保ち、40日後には患者は全治退院した。術直後のCTスキャンでは、脳浮腫を伴った小血腫がnidusの摘出腔に認められたが、特に血腫除去術は行わなかった。

摘出術翌日に行った脳血管造影の動脈相ではnidusは造影されなかった (Fig. 2a)。静脈相 (Fig. 2b, c) では、AVMの流入動脈に造影剤の停滞を認め (stagnant artery)、同時に一部は明らかに動脈と判定されるが、その他は動脈とも静脈、あるいは毛細血管とも判定しえない血管で構成される不規則な径や形をしたhypervascular network patternというべき異常血管網が、nidusを摘出した周囲に認められた。残存nidusや動静脈シャントは認められなかった。

1週後に行った脳血管造影では、stagnant arteryの残存は明らかに認められたが、perinidal hypervas-

cular network 像はほぼ消失していた (Fig. 3a-c)。2回目の手術後2カ月の脳血管造影では、stagnant arteryの径もほぼ正常に戻り、造影剤の流れも正常に戻っていた。またnidusも動静脈シャントも認められなかった。(Fig. 4a, b)。

B 症例 2, 44歳女性

5年前に慢性頭痛のため某脳神経外科施設を訪れたところ、CTスキャンおよび脳血管造影にて3個の未破裂脳動脈瘤とAVMが認められ信州大学病院へ紹介された。頭蓋内出血の既往がないためAVM根治手術は行わず経過観察の方針とした。4年前に未破裂動脈瘤に対して予防的に動脈瘤の頸部クリッピング術を行った。1年前にAVMからの脳内出血を起こしたが、まず保存的に治療した。脳内出血後8カ月目にAVMに対する外科的治療を行った。手術前の検査では血圧は正常で、頭痛を訴える他は、視野を含めて神経学的に異常を認めなかった。

術前の脳血管造影像で、右頭頂部に右前・中・後大脳動脈を流入動脈とする約6×6×4 cmの巨大

Fig. 6 Case 2. Immediate postoperative right carotid angiograms (lateral view). (a) arterial phase. (b) venous phase. Note that a hypervascular network pattern around the removed nidus (perinidal hypervascular network pattern) is seen in the area surrounded by the frame. Stagnant artery is shown by arrow. (c) higher magnification of the framed area in (b), showing fine network pattern and stagnant vessels.

Fig. 7 Case 2. Postoperative CT images. (a) CT image taken on the 2nd postoperative day, showing slight hemorrhage in the cavity resulting from removal of the nidus. (b) CT image taken on the 4th postoperative day. Note hematoma in the operative field, surrounding brain and lateral ventricles. Ventricular drainage tubes are in place (arrowheads).

Fig. 8 Case 2. Right carotid angiograms (lateral view) taken 3 months after surgery. (a) arterial phase. (b) venous phase. No perinidal hypervascular network pattern or AVM is visible.

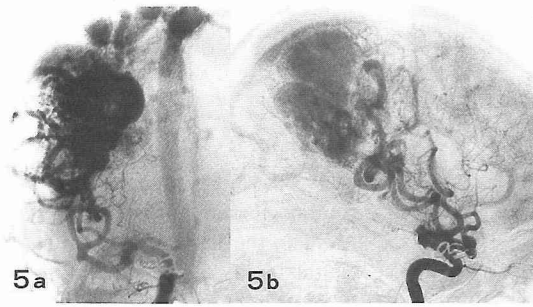
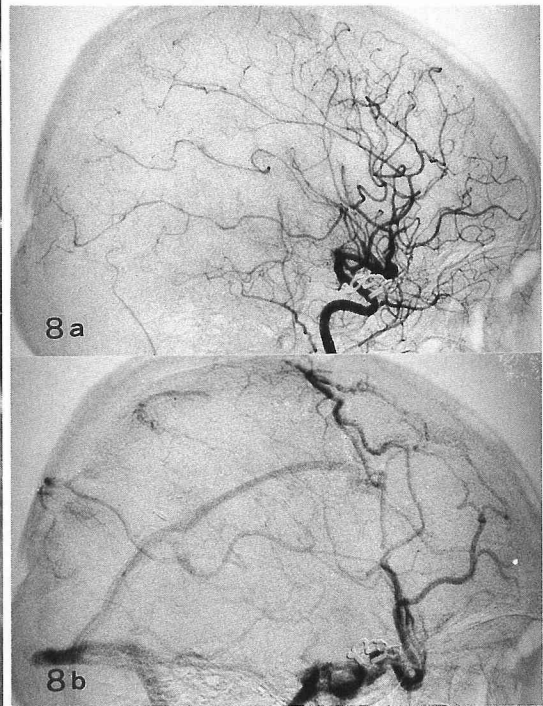
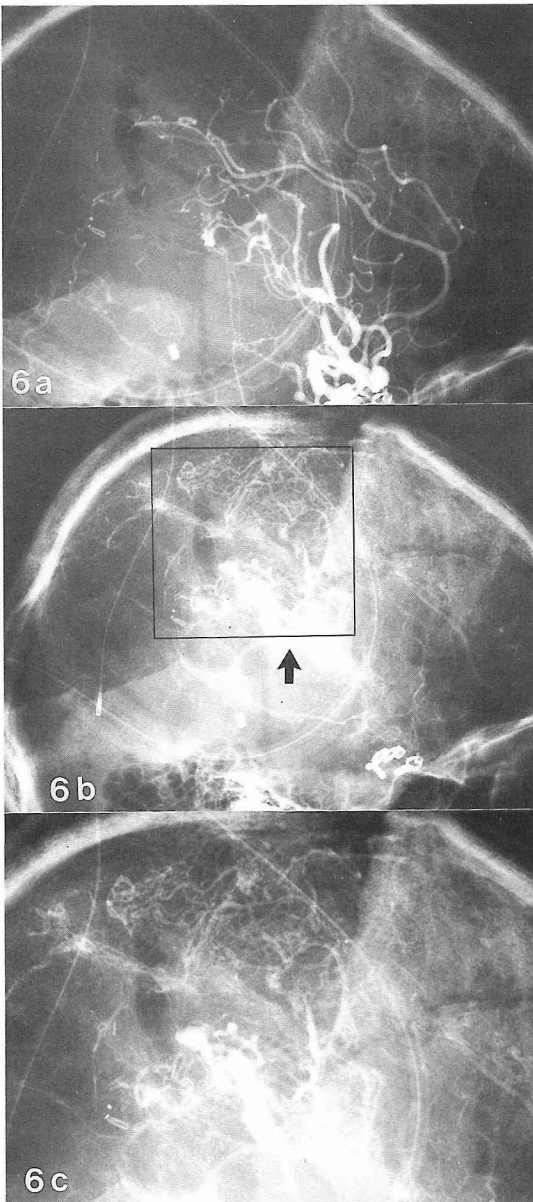


Fig. 5 Case 2. Preoperative right carotid angiograms, showing a large AVM in the right distal parietal region. (a) anteroposterior view. (b) lateral view.



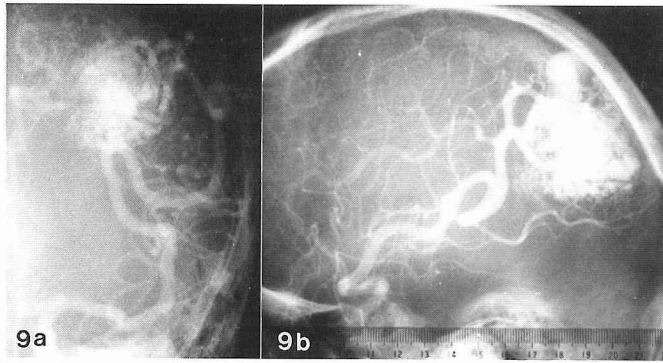
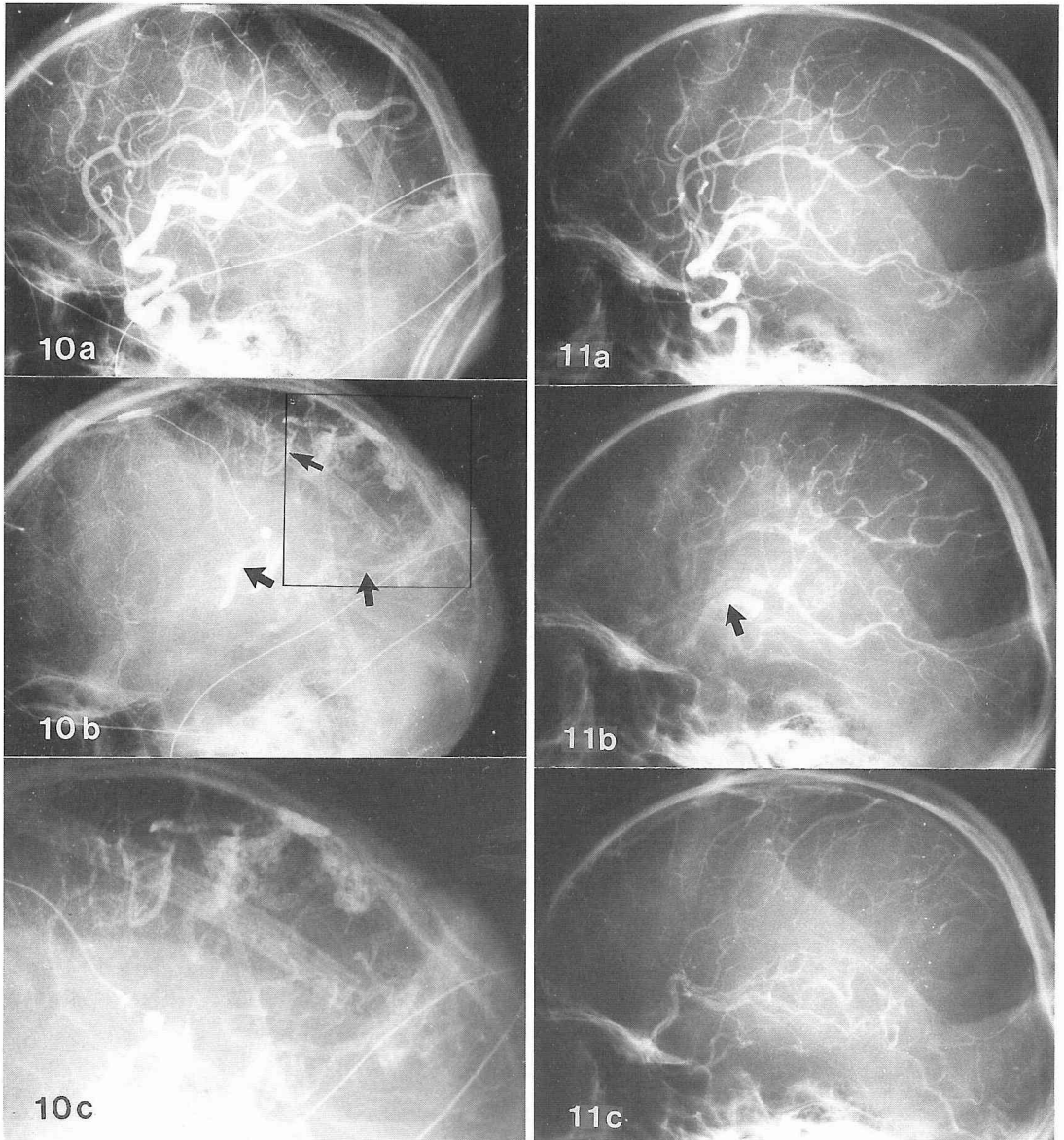


Fig. 9 Case 3. Preoperative left carotid angiograms, showing a large AVM in the left distal parietooccipital area. (a) anteroposterior view. (b) lateral view.



AVM が認められた。導出静脈は脳表の太い静脈瘤様の静脈で上矢状静脈洞へ流入していた (Fig. 5a, b)。

第 1 回の手術では、流入動脈の閉塞と、nidus の部分的剝離を行った。その際、導出静脈の閉塞は行わなかった。手術は特に問題なく終了した。術後、バルビタール療法を 4 日間行ったが、バルビタール療法を中止した翌日、すなわち術後 5 日目と、術後 15 日目に脳内出血が発生した。特に血腫除去手術は行わなかった。

2 回目の手術は初回手術の 1 カ月後に行った。手術直前の状態は、意識は清明であったが左半身片麻痺と左同名性半盲が認められた。術直前の脳血管造影では nidus の出現は前回の脳血管造影よりやや遅延していたが、大きさの変化は認められなかった。2 回目の手術で nidus を全摘出した。

摘出術翌日の脳血管造影の動脈相では nidus は造影されなかった (Fig. 6a)。静脈相では, stagnant artery とともに nidus を摘出した周囲に hypervascular network 像が認められた (Fig. 6b, c)。Nidus の残存や動静脈シャントは認められなかった。摘出術後 2 日目の CT スキャンでは、わずかに摘出腔に出血を認めた (Fig. 7a)。

術後、収縮期血圧を 100mmHg 以下に 10 日間保ったが、術後 4 日目に突然 nidus 摘出腔を中心に脳内出血および脳室内出血が発生した (Fig. 7b)。直ちに側脳室前角より脳室ドレナージを置いたが、nidus の摘出腔の血腫や脳内血腫に対しては外科的処置は行わなかった。

Perinidal hypervascular network 像は、その後 1 週目、2 週目に行った脳血管造影において徐々に消失し、3 週間後には完全に消失していた。退院直前の脳血管造影像で nidus や動静脈シャントは認められなかったが (Fig. 8a, b)、患者は遷延性意識障害状態となった。

C 症例 3, 37歳男性

頭痛を主訴として信州大学脳神経外科を受診した。既往に頭蓋内出血やけいれん発作はなかった。脳血管

造影像で左頭頂後頭部に大きさ約 $5 \times 4 \times 3.5$ cm の巨大 AVM を認めた (Fig. 9a,b)。

第 1 回目の手術で AVM の摘出術を容易に行うことができた。しかし nidus の摘出腔の止血を確認中、誘因なく突然に、凝固切離した流入動脈の断端や剝離面からの出血が起り、脳腫脹が出現してきたため、サイオベンタール 800mg を静注し、低血圧麻酔下にて止血した。術後バルビタール療法を 1 週間行い、患者は 2 カ月後に全治退院し社会復帰した。

摘出術翌日の脳血管造影像では stagnant artery と perinidal hypervascular network 像が認められたが (Fig. 10)、2 週後の脳血管造影像では stagnant artery を認めるものの perinidal hypervascular network 像は消失しており nidus や動静脈シャントも認められなかった (Fig. 11a-c)。

D 症例 4, 38歳男性

1 カ月前に脳内出血で発症した。左頭頂後頭部に約 $8 \times 7 \times 3.5$ cm の巨大 AVM が認められ、3 回に分けて手術が行われた。

3 回目の手術中、nidus 摘出後しばらくして収縮期血圧が 80mmHg から 120mmHg になった時点で、nidus 摘出腔より突然出血が生じた。低血圧麻酔下で止血し、術後バルビタール療法を 1 週間行ったが、患者は 2 カ月後に片麻痺の状態で退院した。

手術翌日の脳血管造影像で nidus 摘出腔の周辺に perinidal hypervascular network 像を認めたが、1 週後の脳血管造影像では消失していた。

V 考 察

A Perinidal hypervascular network 像の特徴

Perinidal hypervascular network 像は、nidus 摘出術直後の脳血管造影像で、nidus 摘出腔周辺に毛細血管相から静脈相にかけて出現する異常血管網の像である。多くの場合、stagnant artery とともに出現する。

ここでいう stagnant artery とは、AVM 摘出後の脳血管造影像で閉塞された流入動脈に造影剤が停滞し

Fig. 10 Case 3. Immediate postoperative left carotid angiograms (lateral view). (a) arterial phase. (b) capillary phase. Note that a hypervascular network pattern around the removed nidus (perinidal hypervascular network pattern) is seen in the area surrounded by the frame. Stagnant arteries are shown by arrows. (c) higher magnification of (b), showing details of the area of perinidal hypervascular network pattern.

Fig. 11 Case 3. Left carotid angiograms (lateral view) taken 2 weeks after surgery. (a) arterial phase. (b) late arterial phase. (c) venous phase. No perinidal hypervascular network pattern or AVM is visible. The stagnant artery remains (arrow).

ているものをさしており、流入動脈の太さや長さは問題としていない。それは時に静脈相までも造影されていることがある。これはHasslerのいうstagnating arteryにはほぼ相当すると思われる⁹⁾。彼は血管径などについては正確に定義していないが、AVM摘出後の脳血管造影像で見られる血管径の太い拡張した流入動脈内の造影剤の停滞像をstagnating arteryと呼んでいるようである。時には、長さ10cmにもおよぶ長いstagnating arteryが10秒以上も脳血管造影像で認められることもあると述べている。

Perinidal hypervascular network像を構成する血管は、一部は明らかに造影剤が停滞した動脈(stagnant artery)であるが、その他は動脈とも静脈、あるいは毛細血管とも判別できない血管であり、その太さや走行は不規則で、これらが脳血管造影像で異常血管網の像を示しているものと思われる。おそらく小さな動脈や静脈、あるいはそれらの側副血行路の吻合血管も造影されているものと考えられる¹⁰⁾。

このperinidal hypervascular network像はモヤモヤ病のWillis動脈輪近くにみられるモヤモヤ血管(moyamoya vessels)と脳血管造影像は似ているが¹¹⁾、Willis動脈輪より遠く離れたところに認められ、毛むくじゃらの様に見えるところから筆者は“モジャモジャ血管(modja-modja vessels)”と呼んでいる。このperinidal hypervascular network像は術後1週から2週で消失するが、これはperinidal hypervascular network像を構成する血管が徐々に血栓化して造影されなくなるためであろう。一方、stagnant arteryは約1カ月から2カ月の間に徐々にその血管径が縮小し、灌流領域にみあった径となり、造影剤の停滞は消失し、流れも正常範囲に戻る⁹⁾¹²⁾。

Hasslerは、AVM摘出術直後の脳血管造影像の所見から術中・術後の異常出血や脳浮腫の合併症の危険因子をあげている⁹⁾。すなわち、stagnant arteryの存在および術後の脳血管造影の毛細血管相や静脈相においてnidus摘出部にenlarged pial arteryを認めることである。このenlarged pial arteryは、筆者の注目しているperinidal hypervascular network像を構成する血管の一つと思われるが、彼はどのような場所の、どのような大きさのAVM摘出例にenlarged pial arteryが出現しやすいかなど詳細な記載をしていない。また筆者が言うperinidal hypervascular network像には、造影剤の停滞したpial arteryの他に、動脈とも静脈、あるいは毛細血管とも判別しえない血

管が含まれ、モジャモジャした感じがある。この像は彼の報告の附図で見られる血管像とは異なっている。

B Perinidal hypervascular network 像の出現機序とその臨床的意義

今回の検討では、諸家の報告¹⁾²⁾と同様、術中・術後の異常出血は大きなAVMの摘出術に発生した。しかも異常出血例は全て遠位部の巨大AVMであった。以下巨大AVMの場合について考察する。

大きなAVMの周辺脳組織は、血液がnidusへ盗血されることにより、低い灌流圧で、脳血流量も下がっているとされる¹⁾。また脳表のAVM例において、AVM摘出術中に流入動脈に直接カニューレーションを行い血管内圧を測定した筆者ら⁷⁾、Nornesら⁴⁾によると、流入動脈の血管内圧は正常人より低く、手術により流入動脈を閉塞すると、流入動脈の心臓側の血管内圧は程度の差はあれ上昇することが報告されている。

この流入動脈閉塞による流入動脈の心臓側の血管内圧の上昇は、nidus摘出後、nidus周辺の脳組織の灌流圧を上げ、脳組織の血流改善をもたらす盗血症状を改善させる場合がある。しかし、この血管内圧の上昇の程度が極度に大きく、また、低灌流圧および低血流に慣らされた大きなAVM周辺の脳組織や血管がその上昇した血管内圧に耐えきれないとき、上昇した血管内圧はnidus周辺の脳組織や血管に対してoverloadとなる。Overloadとなった時、nidusを摘出した周辺の血管や側副血行路の吻合血管も拡張させるので、術前造影されなかったこれらの血管がAVM摘出術直後の脳血管造影像で造影されるようになり、perinidal hypervascular network像を呈するものと推測される。この際、nidusを摘出した周辺の脳組織における静脈還流の障害もperinidal hypervascular network像の出現に関与しているものと思われる。

なぜ遠位部AVMの摘出例のみにperinidal hypervascular network像が出現しやすいかについて筆者は次のように考えている。Nidus周囲の血管はAVM摘出後の灌流圧、血流の変化に対して十分に制御できないこと¹⁾や、遠位部AVMでは、近位部AVMのように近くにWillis動脈輪などの太い側副血行路がないことなどにより、遠位部巨大AVM摘出後、シャント血流量の大部分がnidusを摘出した周囲に分配されるため、血管内圧の上昇も加わってnidus周囲の血管が拡張しやすくなり、perinidal hypervascular network像が出現するのではないかと推測している。

巨大AVMの摘出術で生じる過度に上昇した血管内

圧が、凝固切離した流入動脈の断端や未処置の流入動脈、nidus、導出静脈、および perinidal hypervascular network 像を構成する血管などによって overload の状態になった場合、これらの血管が破綻して出血を起こすものと推定される。

また上昇した血管内圧が nidus 周辺の脳組織におよんで、overload の状態となった時、浮腫が生じ、さらには毛細血管からの出血を起こすことも考えられる。これは、脳組織に対する overload による出血と呼ぶことができる。

我々のいう、overload による出血とは⁶⁷⁾、先に述べた nidus 周辺の血管に対する場合と脳組織に対する場合の両方を含んでいるので、Spetzler ら⁹⁾の脳組織の循環動態の変化の立場から考えた normal perfusion pressure breakthrough theory による出血とは異なる。

AVM 摘出直後の脳血管造影像で、摘出した nidus の周囲に見られる perinidal hypervascular network 像は、導出静脈が手術で閉塞された場合の残存 nidus の造影像ではないかとの疑問がある。従来、手術で明らかに nidus が残され、同時にすべての導出静脈が閉塞された例で脳血管造影像と病理所見とが対比検討された報告は見当たらない。したがって脳血管造影像のみからは、導出静脈がすべて閉塞された場合の残存 nidus と perinidal hypervascular network 像を明確に区別することは困難である。

しかし、本論文で検討した perinidal hypervascular network 像を示した巨大 AVM 症例については、nidus 摘出後は血腫に対して何ら積極的な外科的処置を行わなかったにもかかわらず、その後の脳血管造影像でも perinidal hypervascular network 像は消失し、平均 5 年の観察でも再発した症例はない。このことから perinidal hypervascular network 像は、残存 nidus である可能性は少ないと考えられるが、残存 nidus が血栓化され造影されなくなったという疑問は残るので、この点については今後の検討が必要である。

今回得た事実、すなわち、AVM 摘出直後の脳血管造影像で perinidal hypervascular network 像の出現例に、術中・術後の異常出血が多かったという報告は初めてであり、perinidal hypervascular network 像の所見は、従来から問題とされている巨大 AVM 摘出術に合併して起こる異常出血の説明の根拠、また術後の異常出血の危険性を予知させる徴候といえることができる。

臨床的な観点からは、巨大 AVM の摘出術における

術中・術後の異常出血の原因が、流入動脈の閉塞や AVM 摘出術による血管内圧の過度の上昇によるものとすれば、その対策として血管内圧を急激に、また過度に上昇させないことが必要であろう。具体的には血管内手術を含む staged operation や急激な全身血圧の上昇を避けること、術中あるいは術後患者を低血圧管理下で安静に保つこと、確実な止血などが考えられる。また術直後に脳血管造影を行って、perinidal hypervascular network 像の有無を確かめることがその後の治療方針を決定するうえにも大切である。

IV 結 論

- 1 AVM の摘出術直後に脳血管造影を行い、nidus を摘出した周囲に異常血管網によると思われる特徴的血管像の出現するところがあることを認め、これを perinidal hypervascular network 像あるいは“モジャモジャ血管 (modja-modja vessels)”と称することとした。
- 2 AVM 摘出直後に脳血管造影を行った 48 例を対象として、AVM 摘出術による急激な血行動態の変化などに起因すると思われる術中・術後の異常出血の発生を検討した結果、異常出血は全て nidus の最大径が 5 cm 以上の巨大 AVM 例でかつ Willis 動脈輪より遠位部のものに発生していた。また術直後の脳血管造影像における perinidal hypervascular network 像は異常出血例、あるいは遠位部の AVM に有意に出現しやすいことを明らかにした。
- 3 Perinidal hypervascular network 像の特徴と、その出現機序を考察した。巨大 AVM の摘出術では、流入動脈が急激に閉塞されると流入動脈の心臓側の血管内圧が極度に上昇しやすく、この血管内圧が nidus 周囲の血管や脳組織に対して overload となりやすい。Overload となった時、nidus 周囲の血管や側副血行路の吻合血管も拡張させるので、術前造影されなかったこれらの血管が AVM 摘出術直後の脳血管造影像で造影されるようになり perinidal hypervascular network 像を呈するものと推察した。特に遠位部巨大 AVM の摘出術の場合では、術後、シャント血流量の大部分が nidus を摘出した周囲へ分配されるため perinidal hypervascular network 像が出現しやすいと考えた。Perinidal hypervascular network 像は、overload の状態を示す所見であり、overload により異常出血がおりうるものと考えた。

4 Perinidal hypervascular network 像は異常出血の危険性を示すので、巨大AVM（特に遠位部AVM）の摘出術では摘出術直後に脳血管造影を行ってこの所見の有無を調べることの重要性を強調した。また術中・術後の異常出血に対する治療方針についての考え方を述べた。

（1991年10月）およびInternational Symposium on Intracranial Arteriovenous Malformations（1989年4月）で発表した。

稿を終えるにあたり、御指導と御校閲をいただいた、信州大学脳神経外科学教室小林茂昭教授ならびに名古屋大学脳神経外科学教室杉田慶一郎教授に深甚なる謝意を表します。

本論文の要旨は第50回日本脳神経外科学会総会

文 献

- 1) Spetzler RF, Willson CB, Weinstein P, Mehdorn M, Townsend J, Telles D: Normal perfusion pressure breakthrough theory. Clin Neurosurg 25: 651-672, 1978
- 2) Drake CG: Cerebral arteriovenous malformations: Considerations for and experience with surgical treatment in 166 cases. Clin Neurosurg 26: 145-208, 1979
- 3) Mullan S, Brown FD, Patronas NJ: Hyperemic and ischemic problems of surgical treatment of arteriovenous malformations. J Neurosurg 51: 757-764, 1979
- 4) Nornes H, Grip A: Hemodynamic aspects of cerebral arteriovenous malformations. J Neurosurg 53: 456-464, 1980
- 5) Batjer HH, Devous MD, Seibert GB, Purdy PD, Bonte FJ: Intracranial arteriovenous malformation: Relationship between clinical factors and surgical complications. Neurosurgery 24: 75-79, 1989
- 6) 杉田慶一郎, 竹前紀樹: Large AVM の手術 Neurosurgeons 7: 35-41, 1988
- 7) 竹前紀樹, 小林茂昭, 杉田慶一郎: 脳動静脈奇形の術後管理 —Overload 現象による出血の危険因子・予防・治療—. The Mt. Fuji Workshop on CVD 9: 163-170, 1991
- 8) 加藤庸子, 佐野公俊, 今井文博, 井上孝司, 阿部 守, 神野哲夫, 片田和広, 竹下 元, 外山 宏: Large high flow AVM における pressure breakthrough syndrome の検討. 脳卒中の外科 18: 267-277, 1990
- 9) Hassler W: Hemodynamic aspects of cerebral angioma. Acta Neurochir Suppl (Wien) 37: 1-136, 1986
- 10) Heiss WD, Kvicala V, Prosenz P, Tschabitscher H: The importance of arterial shunting in area of brain distant from arteriovenous malformation. Neurology (Minneapolis) 20: 376, 1970
- 11) Suzuki J, Takaku A: Cerebrovascular moyamoya disease. Disease showing abnormal net-like vessels in base of brain. Arch Neurol 20: 288-299, 1969
- 12) Malis LI: Arteriovenous malformations of the brain. In Youmans JR (ed), Neurological Surgery, 2nd ed, vol 3, pp 1786-1806, WS Saunders, Philadelphia, 1982

(5. 1. 25 受稿)