

受傷対側に発生した外傷性中硬膜動静脈瘻の
自然治癒例

佐藤透 桜井勝
山本祐司 浅利正二

NEUROLOGICAL SURGERY

(国内文献略称:脳外)

第10巻 第7号 別刷
1982年7月10日発行

医学書院

症 例

受傷対側に発生した外傷性中硬膜動脈瘻の 自然治癒例*

佐 藤 透** 桜 井 勝
山 本 祐 司 浅 利 正 二

Key words: Head trauma, Traumatic middle meningeal arteriovenous fistula, Subarachnoid hemorrhage, Spontaneous cure

I. はじめに

外傷性中硬膜動脈瘻は、1951年Fincher¹⁾が最初に報告して以来、比較的稀な頭部外傷合併症とされてきたが、近年の脳血管撮影の普及により、現在では文献上50例を越える報告がなされている。

最近われわれは、頭部打撲後、頭痛、嘔気、嘔吐を訴え搬入され、CTにて限局性くも膜下血腫を認め、脳血管撮影にて受傷側の対側に中硬膜動脈瘻を発見し、経過観察中、約1カ月後に自然治癒を確認した症例を経験した。さらに本症例では、脳血管撮影で特異な流入流出経路を呈し、また自然治癒後のそれで瘻形成部位が示唆されるなど、種々なる点でこれまでの報告例に比し興味ある症例と思われた。

そこで本稿では、この症例を呈示し、特にその発生機転、発生部位、流入流出経路および自然治癒などにつき、若干の考察を加えて報告する。

II. 症 例

患者：75歳 女

主訴：左側頭部痛、嘔気、嘔吐

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：過去2回、短時間の意識消失発作を経験しているが、頭部外傷の既往はない。

現病歴：1980年7月22日、突然意識消失を来たし、50cmの高さの階段から転落、右側頭部を打撲した。約5分後、覚醒したが、頭痛、嘔気、嘔吐を訴えたため、救急車にて当科に搬入された。



Fig. 1 Computed tomogram on admission, showing the subarachnoid hematoma localized in the left Sylvian fissure.

入院時所見：意識は清明で、血圧104/62mmHg、脈拍86/分、整、呼吸24/分、整であり、右側頭部の小挫創以外、一般理学的所見としては特に異常は認められなかった。左側頭部痛、嘔気、嘔吐を訴えたが、四肢運動麻痺、知覚障害、うっ血乳頭、項部硬直などの神経学的異常所見は認められなかった。

検査所見：血液・血清学的検査、尿検査、心電図、脳波などには異常はみられなかった。腰椎穿刺では初圧110mmH₂O、終圧80mmH₂Oで、髄液性状は淡い血性であった。頭部単純写では、右側頭部に約6cmの線状骨折が認められたが、左側には骨折を思わせる所見は

* An Interesting Case of the Traumatic Middle Meningeal Arteriovenous Fistula (1981.7.28 受稿)

** 松山市民病院脳神経外科 (〒790 愛媛県松山市大手町2-6-5), Toru SATOH, Masaru SAKURAI, Yuji YAMAMOTO and Syozi ASARI, Department of Neurological Surgery, Matsuyama Shimin Hospital

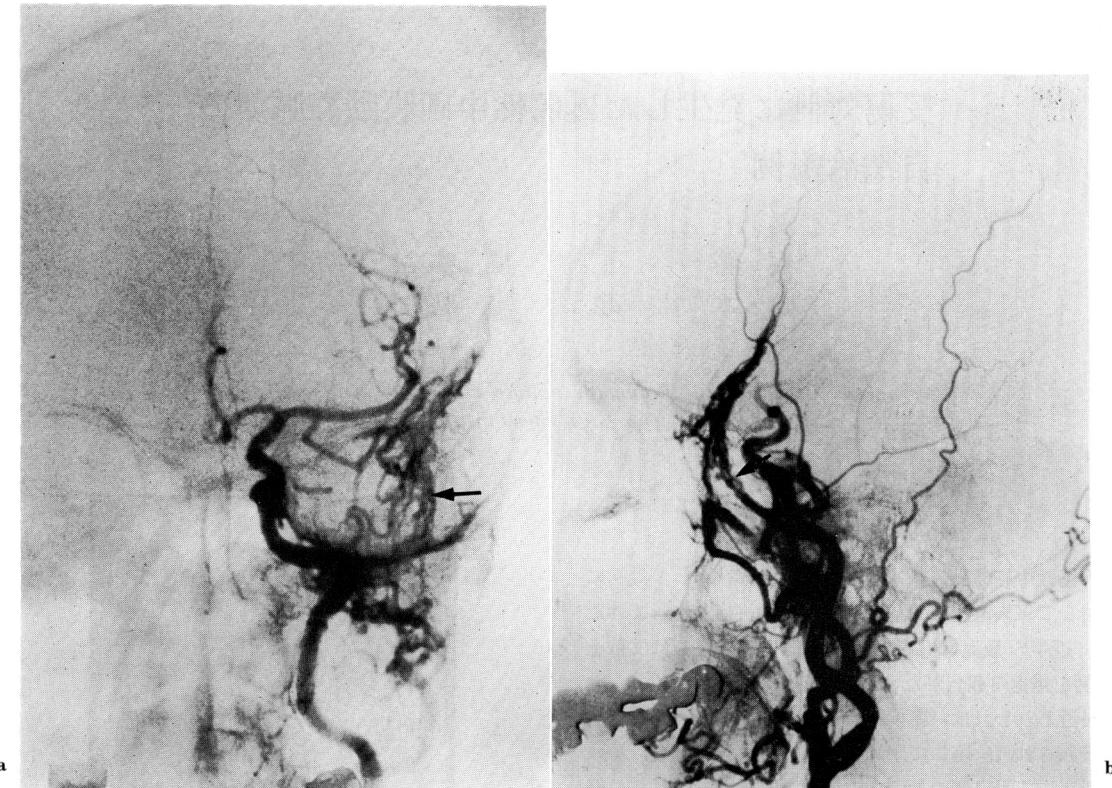


Fig. 2 Left carotid angiogram performed 7 days after head injury (arterial phase). A-P view (a), Lateral view (b). Arrow indicates the point of fistula. Dilated middle meningeal vein directing to the superior sagittal sinus shows so called "railway configuration". Early filling of the pterygoid venous plexus, the cavernous sinus, the basilar plexus, and the inferior petrosal sinus are also demonstrated.

みられなかった。CT スキャン (Fig. 1) では左シリビウス裂内に限局性のくも膜下血腫が認められた。

脳血管撮影所見: 7月28日（受傷後7日目）の左脳血管撮影前後像動脈相 (Fig. 2a) では、拡張した左中硬膜動脈前枝について、左中頭蓋窩底部より左蝶形骨縁に沿って頭蓋骨内面を上行する不規則な血管陰影がみられ、上矢状静脈洞が早期に造影された。また、海綿静脈洞、翼突静脈叢も早期に造影された。左側頭部から頭頂部にかけて、硬膜外血腫と思われる薄い無血管野も認められた。一方、側面像動脈相 (Fig. 2b) では、左中硬膜動脈前枝は起始部より正常の3-4倍に拡張し、その1-2 cm 遠位の左中頭蓋底部で不規則な血管陰影を発し、拡張した中硬膜静脈に短絡したのち、硬膜血管溝中を上行し、上矢状静脈洞に至っている。さらに左蝶形骨縁最前部の膨らみに沿って走行し、正円孔を通り頭蓋外に至り、あるいは短絡部から近位側に走行し、卵円孔を通り頭蓋外に至り、翼突静脈叢に注ぎ、口蓋静脈叢を介し内頸静脈に至る流出経路が認められた。その造影程度

は、上矢状静脈洞のそれに比べてむしろ強かった。また短絡部から近位側の中硬膜静脈、あるいは翼突静脈叢の一部から、海綿静脈洞後半部に流入し、脳底静脈叢左外側部、下錐体静脈洞を介し、内頸静脈に至る流出経路も認められた。Fig. 4 に本症例の流入流出経路をシェーマで示した。

以上の所見より、外傷性中硬膜動脈瘻と診断し、保存的治療にて経過観察を行った。

入院後経過: 左側頭部痛は持続したが、全経過を通じて、耳鳴、頭蓋内雜音、うつ血乳頭、片麻痺などの出現はみられなかった。8月25日（受傷後35日目）頃より、持続していた左側頭部痛が著明に軽減したため、翌日、左脳血管撮影を再検したところ、前回認められた動脈瘻は完全に消失していた。さらに中硬膜動脈前枝の分岐して約 1.5 cm 遠位部に壁の不整が認められた (Fig. 3a, b)。

9月6日退院し、外来にて follow up 中であるが、再発を疑わせる症状の出現はみていない。

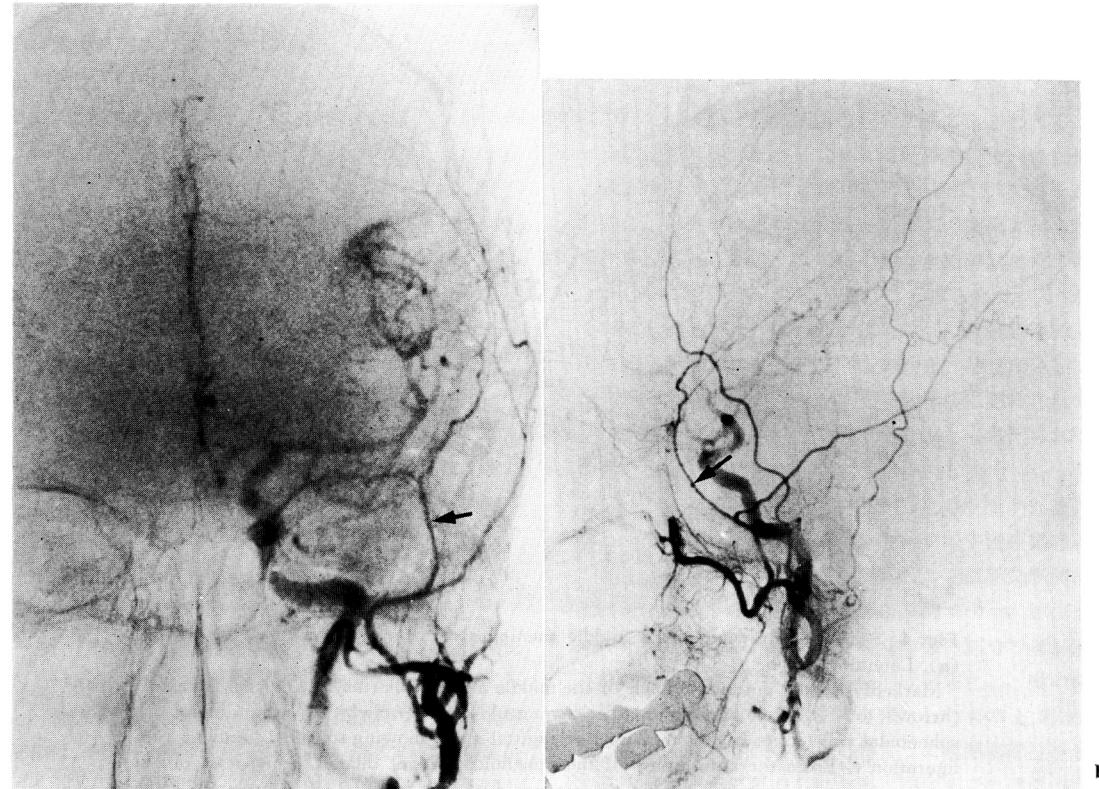


Fig. 3 Left carotid angiogram reexamined 35 days after head injury (arterial phase). A-P view (a), Lateral view (b). Note disappearance of the fistula and the irregular wall of the anterior branch of the middle meningeal artery (arrow), which corresponds to the point of the fistula.

III. 考 按

外傷性中硬膜動脈瘻は、1951年Fincher⁴⁾が最初の報告をして以来、比較的稀な頭部外傷合併症とされていて。しかし、脳血管撮影の普及とともにその報告も増加し、現在では文献上約50例の報告がなされている。

このなかで、われわれの経験した外傷性中硬膜動脈瘻は、発生部位が受傷側対側であること、くも膜下血腫を合併したこと、臨床症状および脳血管撮影所見より受傷約1カ月後に完全な自然治癒を来たしたこと、さらに脳血管撮影所見にて特異な流入流出経路や瘻形成部位が示唆されたことなど、種々なる点で興味ある症例といえよう。

頭部外傷後にみられる中硬膜動脈瘻の多くは、頭蓋骨の線状骨折による直接的な力学的作用に基づき、硬膜血管の損傷を来たし発生するものであり、既報告例のほとんどに硬膜血管溝を横断する線状骨折が確認されている^{2,4,7,10,11,13,16,22,24-26)}。しかしながらX線上、頭蓋骨骨折の認められなかった症例もあり^{18,20)}、受傷時の衝撃に

より頭蓋骨に変形を来たし、dura mater-bone separation⁵⁾ や dura mater に歪みを生じることにより、すなわち、間接的に硬膜血管の破綻を生ずる可能性もある。

一方、硬膜血管は硬膜外表にあり、血管溝中を走行し、中硬膜動脈は伴走する静脈に囲まれて、あるいは“sphenobregmatic sinuses”と呼ばれる intradural venous sinus の中を走行し、これら venous sinus 外表の硬膜は血管溝底で骨と密着しており¹²⁾、外力により容易に硬膜や硬膜血管の損傷を来たしうる。

また、他の頭蓋内筋性動脈と同様、中硬膜動脈の分岐部に多くみられる中膜の欠損⁹⁾や、高血圧症、脳動脈硬化症などの基礎疾患に基づく中硬膜動脈壁の病理学的変化²²⁾は、動脈壁の弾力性の低下をもたらし、外力に対し中硬膜動脈の損傷を来たしやすくなるものと思われる。

外傷性中硬膜動脈瘻は、上述のように、頭部外傷に基づく硬膜血管への、直接的あるいは間接的な外力が、硬膜血管自体の有する解剖学的、組織学的、病理学的な性状と関連して発生するものと考えられる。ゆえに、瘻

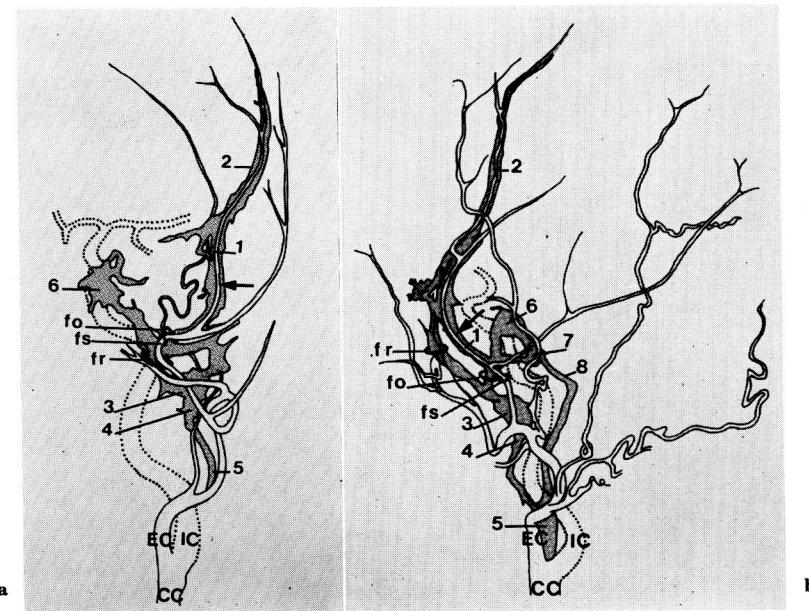


Fig. 4 Schematic drawing of the middle meningeal arteriovenous fistula. A-P view (a), Lateral view (b).

Markedly dilated anterior branch of the middle meningeal artery (1), forms the fistula (arrow) to the accompanying middle meningeal vein (2), which ascends along the sphenoidal ridge directing to the superior sagittal sinus showing so called "railway configuration". From the anterior tip of the sphenoidal ridge, dilated vein passes out of the foramen rotundum (fr) to join the pterygoid venous plexus (3). Proximally from the fistula, another vein passes out of the foramen ovale (fo) to join the same plexus (3). It is mainly drained to the palatine venous plexus (4), then to the internal jugular vein (5), but partially to the posterior portion of the cavernous sinus (6), lateral half of the basilar plexus (7), the inferior petrosal sinus (8), then to the internal jugular vein. fs; foramen spinosum, CC; common carotid artery, IC; internal carotid artery, EC; external carotid artery.

の形成はこれらの相互作用で決定されるため、必ずしも骨折線直下に瘻が存在するとは限らない²⁵⁾し、骨折を伴わず発生する場合²⁰⁾もありうる。

自験例では、転倒により右側頭部を打撲し、右側頭骨に線状骨折を来たしたが、動脈瘻の認められた左側頭-中頭蓋底部にはX線上骨折線を認めなかった。ゆえに、動脈瘻の形成は、前述のように、受傷時の硬膜の歪みにより、骨折を伴わず、硬膜血管の破綻を来たしたことによるものと考えられる。しかしながら、X線上認められなかった骨折線が手術時初めて確認されること¹⁸⁾もあり、本症例では自然治癒を来たしたため手術を行っておらず、骨折の有無の詳細は不明である。

合併血腫については、動脈瘻形成時に硬膜血管や硬膜の破綻を来たすことがあるため、硬膜外あるいは硬膜下血腫を形成することが多い^{13,16,18,22,24-26)}。また、硬膜動脈瘻の形成は、これら血腫形成に対して“protective mechanism”として存在しているとも考えられている²²⁾。

硬膜血管の位置する解剖学的特徴により、硬膜内に動脈瘻が形成されれば、一般的にくも膜下出血を来たさないわけである。しかしながら、penetrating vessels を介しての硬膜内面の毛細血管網¹⁴⁾の血流動態の異常、bridging vein を介した脳表との連絡、硬膜どくも膜との瘻⁶⁾、脳表静脈系の損傷³⁾などがある場合には、瘻形成時、直接くも膜下腔に出血しうると考えられる。

これまでの報告では、腰椎穿刺にて血性髄液が証明された例は比較的多いが、いわゆる外傷性くも膜下出血であった可能性も強く、われわれの症例のように、受傷時にCTなどにより明瞭なくも膜下血腫の存在が確認された例は見当らない。自験例では薄い硬膜外血腫を合併しており、動脈瘻形成時、硬膜血管、硬膜、さらに一部くも膜の損傷をも同時に来たし、限局性のくも膜下血

腫を生じたものと考えた。

中硬膜動脈瘻の流入流出経路は、瘻形成部位、血管損傷の程度、中硬膜動脈の血行力学的因子により決定される。通常、中硬膜静脈は、遠位では上矢状静脈洞に、棘孔より下方では翼突静脈叢に灌流されるが、pteron 部からの forceful retrograde injection では、蝶形頭頂洞を介し海綿静脈洞に至る経路と、中頭蓋窓底硬膜内血管を介し上錐体静脈洞に至る経路との2つの副血行路が知られている²⁰⁾。文献上記載のある38例中、中硬膜動脈前枝を流入動脈としたものは35例あり、そのうち流出路として上矢状静脈洞に至るもののが30例と最も多く、翼突静脈叢に至るもの9例、蝶形頭頂洞に至るもの2例、そのほか diploic vein に至るもの3例であった。また中硬膜動脈後枝を流入動脈としたものは3例あり、いずれも上錐体静脈洞に流出していた。このように、流出路として上矢状静脈洞に至る例が多いことは、頭蓋窓部に瘻形成を生ずる場合が多いことと関連しているものと思われる。

一方、自験例では、自然治癒を確認した脳血管撮影から retrospective に動脈瘻の血行動態を検討してみると、流入動脈は拡張した中硬膜動脈前枝であり、瘻形成部位は、その分岐部より約1.5cm 遠位の中頭蓋窓底部であり、この部を介して伴走する中硬膜静脈に短絡したものと判断された。このような部位での瘻形成のために、シェーマ (Fig. 4) に示すとおり、特徴ある流出形態を来たしたものと思われる。すなわち、瘻形成遠位部の中硬膜静脈を介し上矢状静脈洞に至る経路もみられるが、むしろ蝶形骨縫最前部の膨らみに沿って走行し、正円孔を通り翼突静脈叢に至る経路、および、瘻形成近位部の中硬膜静脈を介し、卵円孔を通り翼突静脈叢に至る経路が、脳血管撮影上より明瞭に描出されている。さらに、瘻形成近位部の中硬膜静脈の一部から直接的に、あるいは、翼突静脈叢から海綿静脈洞後半部にも流出しており、脳底静脈叢左外側半、下錐体静脈洞を介し、内頸静脈へと流出している。このように特異な流出経路を示した例は今まで報告されていない。

さて、硬膜動脈瘻の自然治癒ないしは縮小を来たしたもののは、今までに自験例を含め11例が報告されている^{1,2,8,10,11,13,16,22,24,26)}。

受傷から自然治癒が脳血管撮影上確認されるまでの期間は、3日1例²²⁾、16日1例¹⁰⁾、1カ月3例^{24,26)}、4カ月1例⁹⁾、5カ月1例¹¹⁾、18カ月1例¹⁰⁾であり（他は記載なし）、自然治癒とともに臨床症状の改善をみるとが多い。しかし、特に変化がみられず、follow up 中、偶然自然治癒が確認された例もある¹¹⁾。これら自然治癒

した症例では頭部外傷が比較的軽度で、血腫を合併していない例^{2,4,7,10,11,20,26)}や、それがあってもわずかな例で、臨床経過も良好な例にみられることが多く、これらにおいては硬膜血管の損傷は軽度であると思われる。

自然治癒の機序としては、脊髄動脈瘻¹⁵⁾、外傷性内頸動脈海綿静脈洞瘻²¹⁾、硬膜動脈奇形^{3,17)}でのそれと同様に、静脈内血栓が成長して短絡部の閉塞に至ったものと考えられ、感染、妊娠・出産、血液凝固異常、血圧下降、動脈硬化などが誘因として挙げられている³⁾が、不明のものも多い。太田ら¹⁹⁾によれば、硬膜動脈奇形では約4% (164例中6例) に経過中、治癒ないしは縮小化がみられ、その大半が脳血管撮影後に認められており、造影剤による血管壁の刺激が誘因とも考えられ²¹⁾、興味あるところである。

自験例では発症後34日目に臨床症状の著明な改善を認め、その翌日の脳血管撮影の再検にて中硬膜動脈瘻の完全消失を確認した。さらに、その中硬膜動脈前枝の走行をたどってみると、分岐部より約1.5cm 遠位部で壁の不整が認められた。おそらく、この部分で瘻が形成され、何らかの原因により血栓形成を来たし、瘻の閉塞を生じ、動脈瘻の自然治癒を来たしたものと思われる。なお、脳血管撮影上、このように瘻閉塞部位を示唆する所見が明瞭に認められた報告は今までには見当らない。

最後に、本症の治療について簡単に述べる。外傷性中硬膜動脈瘻には、保存的治療にて経過観察中に自然治癒を来たすものと、存続するものとがある。一般的に、軽度の頭部外傷後に生じた動脈瘻で、それが単独で存在、あるいはわずかな硬膜内外の血腫のみを合併し良好な臨床経過をたどる場合は、脳血管撮影上、動脈瘻は“railway configuration (paired vein type)”を呈することが多く¹⁶⁾、このような例では動脈瘻の自然治癒が期待されよう。しかしながら柴田ら²³⁾は、受傷後14年間、無症状に経過し、くも膜下出血を起こした1例を報告しており、治癒傾向を認めない例では、無症状であっても、手術が必要な場合もあると思われる。

このように、いまだ本症の治疗方法に関して一定の見解が得られておらず、したがって脳血管撮影、CTスキャンなどにより慎重に経過観察し、それぞれの治療方針が決定されるべきであろう。

IV. 結語

転倒打撲後、受傷側対側に発生し、くも膜下血腫を合併し、さらに経過観察中、自然治癒を来たした外傷性中硬膜動脈瘻の1例を報告した。

その発生機転は、頭部外傷に基づく硬膜血管への直接的、間接的外力と、硬膜血管自体の有する、解剖学的、組織学的、病理学的な素因との相互作用が重要な因子であろう。

自験例において、中硬膜動脈瘻の脳血管撮影とその自然治癒後のそれとを検討し、瘻形成部位、流入流出経路、自然治癒機転などにつき考察した。

稿を終わるにあたって、本症例の脳血管撮影所見について多くの御教示を賜った、福岡大学病院放射線診断部 奥寺利男先生に深謝致します。

なお本論文の要旨は第29回日本神経学会中国・四国地方会(1980、米子)において発表した。

文 献

- 1) 安藤 隆、山口三千夫、河合義友、本多雅明、須原邦和: 自然軽快したと思われる外傷性中硬膜動脈瘻の1例. 日本外科宝函 **41**: 58, 1972
- 2) Betz H: Traumatische arteriovenöse Fistel zwischen Arteria und Vena meningica media—Spontane Rückbildungstendenz bei angiographischen Kontrollen—. Radiologie **14**: 528-531, 1974
- 3) Bitoh S, Sakaki S: Spontaneous cure of dural arteriovenous malformation in the posterior fossa. Surg Neurol **12**: 111-114, 1979
- 4) Fincher EF: Arteriovenous fistula between the middle meningeal artery and the greater petrosal sinus. Ann Surg **133**: 886-888, 1951
- 5) Ford LE, McLaurin RL: Mechanisms of extradural hematomas. J Neurosurg **20**: 760-769, 1963
- 6) 藤津和彦、小田正治、桑原武夫: クモ膜下出血で発症した脳硬膜動脈奇形の1例. 脳外 **2**: 75-79, 1974
- 7) 福井仁士、田中 彰、米増祐吉、北村勝俊: 外傷性中硬膜動脈瘻—特に遷延する症例について. 外傷 **6**: 271-276, 1975
- 8) cited from 7)
- 9) Hassler O: Medial defects in the meningeal arteries. J Neurosurg **19**: 337-340, 1961
- 10) Ishii R, Ueki K, Ito J: Traumatic fistula between a lacerated middle meningeal artery and a diploic vein. J Neurosurg **44**: 241-244, 1976
- 11) Jackson DC, du Boulay GH: Traumatic arteriovenous aneurysm of the middle meningeal artery. Brit J Radiol **37**: 788-789, 1964
- 12) Jones FW: On the grooves upon the ossa parietalia commonly said to be caused by the arteria meningea media. J Anat Physiol **46**: 228-238, 1912
- 13) 桂田菊嗣、杉本 侃、黒田良太郎: 頭部外傷の脳血管撮影における Extravasation. 脳神経 **20**: 1117-1123, 1968
- 14) Kerber CW, Newton TH: The macro and microvasculature of the dura mater. Neuroradiology **6**: 175-179, 1973
- 15) Kim YH, Gildenberg PL, Duchesneau PM: Angiographic evidence of spontaneous closure of nontraumatic arteriovenous fistula of the vertebral artery. J Neurosurg **38**: 658-661, 1973
- 16) Kitahara T, Shirai S, Owada T, Maki Y: Traumatic middle meningeal arteriovenous fistula—Report of 3 cases and analysis of 32 cases—. Eur Neurol **16**: 136-143, 1977
- 17) Magidson MA, Weinberg PE: Spontaneous closure of a dural arteriovenous malformation. Surg Neurol **6**: 107-110, 1976
- 18) Nakamura K, Tsugane R, Ito H, Obata H, Narita H: Traumatic arterio-venous fistula of the middle meningeal vessels. J Neurosurg **25**: 424-429, 1966
- 19) 太田富雄、梶川 博: 硬膜動脈奇形. 神經外科 **18**: 439-472, 1978
- 20) Pakarinen S: Arteriovenous fistula between the middle meningeal artery and the sphenoparietal sinus. J Neurosurg **23**: 438-439, 1965
- 21) Potter JM: Carotid-cavernous fistula—Five cases with “spontaneous” recovery—. Brit Med J **2**: 786-788, 1954
- 22) Schechter MM, Zingesser LH, Rayport M: Torn meningeal vessels—An evaluation of a clinical spectrum through the use of angiography—. Radiology **86**: 686-695, 1966
- 23) 柴田孝行、田中良正: クモ膜下出血を起した中硬膜動脈瘻の1治験例. 脳神経 **22**: 1065-1069, 1970
- 24) 岩本勝司、玉木紀彦、松本 悟: 外傷性中硬膜動脈瘻2例の経験. 外傷 **7**: 392-396, 1976
- 25) 安里令人、徳力康彦、三輪佳宏、福光太郎: 外傷性中硬膜動脈瘻の10例. 日本災害医学会会誌 **26**: 864-869, 1978
- 26) Wilson CB, Cronic F: Traumatic arteriovenous fistulas involving middle meningeal vessels. JAMA **188**: 953-957, 1964

Abstract

An Interesting Case of the Traumatic Middle Meningeal Arteriovenous Fistula

by

Toru SATOH, Masaru SAKURAI,
Yuji YAMAMOTO and Syoji ASARI

from

Department of Neurological Surgery,
Matsuyama Shimin Hospital,
Ehime, Japan

The authors reported an interesting case of the traumatic middle meningeal arteriovenous fistula which was caused by the minor head injury on the opposite side complicated with a subarachnoid hematoma, and was completely cured 35 days after head injury without any surgical intervention.

A 75-year-old woman fell down after unconsciousness fit and hit her right head, then visited Matsuyama Shimin Hospital complaining of nausea, vomiting and severe left temporalgia. Neurologically, no other abnormalities were found. On plain skull roentgenograms, a linear fracture was noted on the right temporal bone, but not on the left side. A subarachnoid hematoma localized in the left Sylvian fissure was identified on plain computed tomograms. Left carotid angiograms revealed the middle meningeal arterio-

venous fistula at the left middle fossa, which showed an characteristic drainages, i.e. mainly draining to the pterygoid venous plexus and the superior sagittal sinus, partially to the cavernous sinus. She was admitted to our ward and was treated only conservatively. Thirty-five days after head injury, her complaints improved remarkably and left carotid angiograms, performed on the next day, disclosed complete disappearance of the previous fistula, and suggested the point of fistula clearly.

Documenting the computed tomogram and the angiograms

of our case, possible mechanism of fistula formation and its spontaneous cure was discussed. The middle meningeal arteriovenous fistula was formed by the interaction between the direct or indirect influence of head injury and anatomical, histological and pathological factors of meningeal vessels themselves. Spontaneous cure of the fistula resulted from thrombosis at the point of fistula. In our case, irregularity of the wall of anterior middle meningeal artery on the repeated angiograms supported this view.

(Received: July 28, 1981)