

ガンマナイフ後、嚢胞を形成したAVM症例で CT perfusion上興味深い所見を呈した一例

森大輔、大里俊明、片岡丈人、佐藤憲市、麓健太郎、荻野達也、
遠藤英樹、福島大地、鈴木聡、高梨正美、上山憲司、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科、公益財団法人北海道脳神経疾患研究所

An interesting finding on CT perfusion in a case of cerebral AVM with cyst formation after Gamma Knife RadioSurgery: case report

Daisuke MORI, M.D., Satoshi SUZUKI, M.D., Toshiaki OSATO, M.D., Daichi FUKUSHIMA, M.D.,
Hideki ENDO, M.D., Tatsuya OGINO, M.D., Kentaro FUMOTO, M.D., Ken-ichi SATO, M.D.,
Taketo KATAOKA, M.D., Masami TAKANASHI, M.D., Jyoji NAKAGAWARA, M.D.,
Hirohiko NAKAMURA, M.D.

Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital and Hokkaido Brain Research Foundation,
Sapporo, Japan

Abstract:

A 73-year-old man with subarachnoid hemorrhage was admitted to our hospital with complaint of sudden headache. Diagnostic digital subtraction angiography revealed a cerebral arteriovenous malformation located at the right frontal lobe. Coil embolization was performed. After the acute phase of subarachnoid hemorrhage, gamma knife radiosurgery was performed. 9 years later, the patient showed left hemiparesis and disturbance of consciousness. Magnetic resonance imaging showed a cyst formation at the right frontal lobe. CT perfusion imaging showed interesting findings such as an increase of permeability and the presence of cerebral blood volume at residual nidus. Pathological diagnosis was cavernous angioma.

Key words: cerebral arteriovenous malformation, radiosurgery, CT perfusion

はじめに

脳AVM (ArterioVenous Malformation) に対するガンマナイフ治療 (gamma knife radiosurgery; GKRS) 後の嚢胞形成は、既知の合併症の一つである。

今回我々は、ガンマナイフ治療後、嚢胞を形成したAVMの症例で、術前に施行したCT perfusionで残存nidusに関する興味深い所見 (permeabilityの亢進) を呈した症例を経験したので報告する。

症 例

73歳男性。2001年4月、頭痛を主訴に当院外来を受診した。頭部CTにてクモ膜下出血を認めた。脳血管造影にて右前頭葉にAVM (Spetzler and Martin grade 2 : S1,E0,D1, 流入動脈: 右中大脳動脈、流出静脈: 脳底静脈) を認め、これに対しコイル塞栓術を施行した (Fig. 1A-B)。同年6月、残存AVMに対してガンマナイフ治療 (最大線量37.0Gy, 辺縁線量18.5Gy, nidus size: 29*24*16 mm) を施行した。2004年6月、脳血管造影にてAVMの完全閉塞を確認した。以降、AVMの再開通は認めなかった (Fig. 2A,B)。2010年7月、頭部MRIにて残存nidus

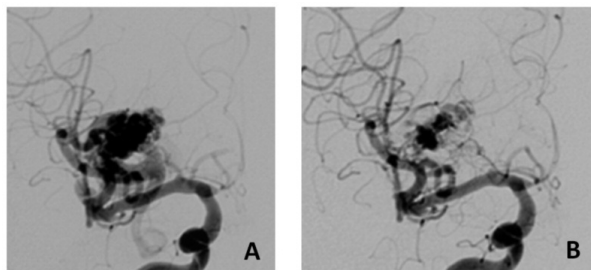


Fig. 1 脳血管造影. 塞栓術前 (A), 塞栓術後 (B)

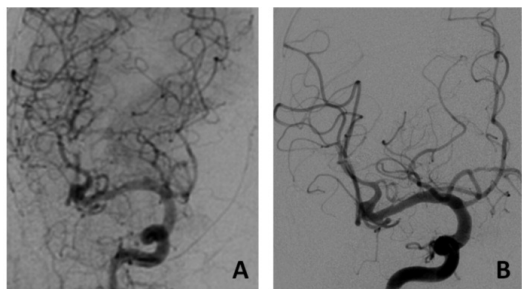


Fig. 2 塞栓術後にガンマナイフ照射を行い、血管造影上の完全閉塞を確認していた。2008年 (A), 2010年 (B)。

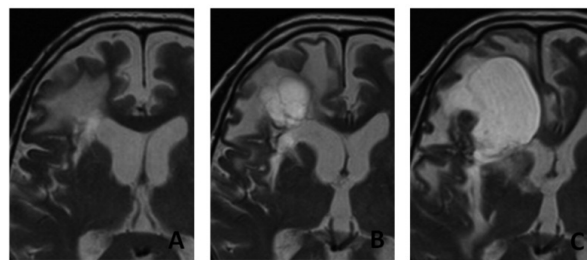


Fig. 3 T2強調画像。2010年から嚢胞形成を認めた。2008年 (A), 2010年 (B), 2011年 (C)

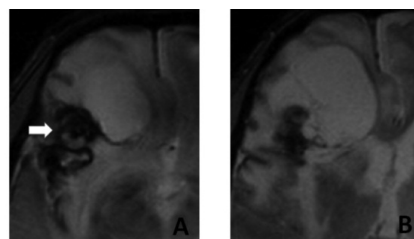


Fig. 4 T2*強調画像。残存nidus部はhypointensity (矢印) であった。

部前内方に嚢胞形成を認めた。無症候のため経過観察していたが、同年10月、左上肢麻痺、意識障害を呈したため治療目的で入院とした。頭部MRI (T2WI) にて嚢胞増大を認めた (Fig. 3A-C)。T2*強調画像にて残存nidus部に低信号域を認めた (Fig. 4)。

頭部CT perfusionにて、残存nidus部にpermeabilityの軽度亢進と、CBV画像にて血管床の存在を認めた (Fig. 5)。これより、ガンマナイフ治療後の残存nidusからの蛋白漏

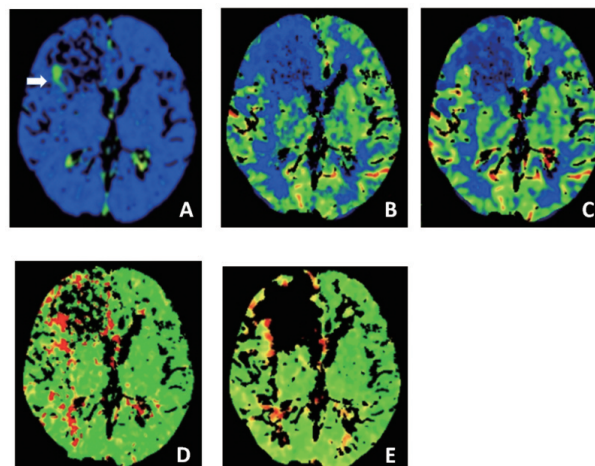


Fig. 5 術前CT perfusion (A: permeability, B: cerebral blood flow (CBF), C: cerebral blood volume (CBV), D: mean transit time (MTT), E: time to peak (TTP))。残存nidus部にpermeability亢進と、CBV画像にて血管床の存在を認めた (矢印)。

出に伴う嚢胞形成と診断した。症候性であり、治療適応と判断した。臨床経過およびCT perfusionの所見から、根治的に嚢胞開放と残存nidusの摘出を選択した。嚢胞内容液は黄色透明であった。嚢胞を開放した後、嚢胞壁内面を観察したが、血管構造は認めなかった。近接する残存nidus部は赤色を呈し、血管腫様であった。摘出した病理標本は、海綿状血管腫であった (Fig. 6)。嚢胞壁に血管、上皮組織は認めなかった。術後、左上下肢麻痺および意識障害は改善し自宅退院となった。

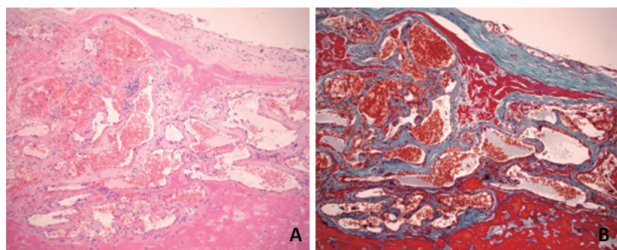


Fig. 6 病理所見.(A:HE染色, B:Elastica Masson染色). 嚢胞後方の血管腫様構造には、海綿状血管腫の所見を認めた。

考 察

脳動静脈奇形に対するガンマナイフ治療の有効性はすでに確立されているが、照射後に生じる遅発性合併症に注意を要する。代表的な合併症の一つに、残存nidus周辺脳浮腫があるが、出現率は30-50%と報告されている¹⁻⁴⁾。ほかに、まれな合併症として放射線誘発腫瘍^{5,6)}、expanding hematoma⁷⁾、海綿状血管腫の新生¹²⁾ などが報告されている。

嚢胞形成^{8,9,10,11)} も周知の合併症の一つである。発生頻度は2.0-7.5%^{9,10,11)} と報告により異なるが、観察期間が長くなるほど発生頻度は高くなると推察される⁹⁾。発症時期は照射後平均3-10年と報告により異なる^{9,10,11)}。ガンマナイフ治療後の嚢胞形成に関与する因子として、塞栓術の既往および脳浮腫の有無⁹⁾、最大線量、大きな残存nidus、残存nidusの完全閉塞⁸⁾ などが指摘されている。嚢胞形成に対する治療法には、Ommaya貯留槽設置¹³⁾、手術摘出、cyst-peritoneal shunt¹⁴⁾ などが行われており、いずれも予後は良好と報告されている。

本症例における治療手段として、残存nidusの摘出を選択した。判断根拠は、脳血管造影上は完全閉塞であったものの、CT perfusionにて残存nidus部にpermeabilityの軽

度亢進とCBV画像にて血管床の存在を認めたためである。この所見から、残存nidusからの蛋白漏出 (滲出液の貯留) を想定し、根治のためには残存nidusの摘出が必要と考えた。

病理結果は海綿状血管腫であった。Motegiらはガンマナイフ治療後に発生した海綿状血管腫の症例を報告している¹²⁾ が、術前にCT perfusionを用い血管腫からの蛋白漏出を伴う嚢胞形成を予見したという報告は渉猟し得た範囲では見られなかった。CT perfusionによるpermeability画像の評価は、ガンマナイフ治療後の嚢胞形成機序を想定する際に有用と考えられた。

結 語

我々は出血発症の脳AVMに対し、コイル塞栓術およびガンマナイフ治療を施行し、治療9年後に嚢胞形成を来した1例につき報告した。CT perfusionで残存nidus部の海綿状血管腫におけるpermeability亢進と血管床の存在を認めた。CT perfusionは術前診断の一助となった。

参考文献

1. Flickinger JC, Kondziolka D, Maitz AH, et al: Analysis of neurological sequelae from radiosurgery of arteriovenous malformations: how location affects outcome. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 1988; 40: 273-278.
2. Ganz JC, Reda WA, Abdelkarim K, et al: A simple method for predicting imaging-based complications following gamma knife surgery for cerebral arteriovenous malformations. *J Neurosurg*, 2005; 102 Suppl: 4-7.
3. Guo WY, Lindquist C, Karlsson B, et al: Gamma knife surgery of cerebral arteriovenous malformations: serial MR imaging studies after radiosurgery. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 1993; 25: 315-323.
4. Smyth MD, Sneed PK, Ciricillo SF, et al: Stereotactic radiosurgery for pediatric intracranial arteriovenous malformations: the University of California at San Francisco experience. *J Neurosurg*, 2002; 97: 48-55.
5. Berman EL, Eade TN, Brown D, et al: Radiation-induced tumor after stereotactic radiosurgery for an arteriovenous malformation: case report. *Neurosurgery*, 2007; 61: E1099.
6. Kaido T, Hoshida T, Uranishi R, et al: Radiosurgery-induced brain tumor. Case report. *J Neurosurg*, 2001;

95:710-713.

7. Kurita H, Sasaki T, Kawamoto S, et al: Chronic encapsulated expanding hematoma in association with gamma knife stereotactic radiosurgery for a cerebral arteriovenous malformation. Case report. J Neurosurg, 1996; 84: 874-878.
8. Izawa M, Hayashi M, Chernov M, et al: Long-term complications after gamma knife surgery for arteriovenous malformations. J Neurosurg, 2005; 102 Suppl: 34-37.
9. Pan HC, Sheehan J, Stroila M, et al: Late cyst formation following gamma knife surgery of arteriovenous malformations. J Neurosurg, 2005; 102 Suppl: 124-127.
10. Yamamoto M, Jimbo M, Hara M, et al: Gamma knife radiosurgery for arteriovenous malformations: long-term follow-up results focusing on complications occurring more than 5 years after irradiation. Neurosurgery, 1996; 38: 906-914.
11. 周藤高, 松永成生, 末永潤ほか: 脳動静脈奇形に対するガンマナイフ治療後の嚢胞形成. 脳卒中の外科, 2010; 38: 228-234.
12. Motegi H, Kuroda S, Ishii N, et al: De novo formation of cavernoma after radiosurgery for adult cerebral arteriovenous malformation—case report. Neurol Med Chir (Tokyo), 2008; 48: 397-400.
13. Kim MS, Lee SI, Sim JH: A case of very large cyst formation with Gamma Knife radiosurgery for an arteriovenous malformation. Stereotact Funct Neurosurg, 1999; 72 Suppl 1: 168-174.
14. Pollock BE, Brown RD Jr: Management of cysts arising after radiosurgery to treat intracranial arteriovenous malformations. Neurosurgery, 2001; 49: 259-264.