

症例報告

一側視野に局限した複雑幻視を呈した硬膜動静脈瘻の1例

小出 眞悟¹⁾ 畠山 公大^{1)*} 上村 昌寛¹⁾
 菊池 文平²⁾ 長谷川 仁²⁾ 小野寺 理¹⁾

要旨：右側視野内に視野欠損を伴わない複雑幻視を呈した76歳の女性。脳波検査ではT5、P3を焦点とする鋭一過性波を認めた。頭部MRIでは左下部側頭葉を中心に左側頭後頭葉白質に信号変化を認めた。脳血管造影法で左後頭動脈から左横静脈洞に血流を認め、硬膜動静脈瘻（dural arteriovenous fistula; DAVF）と診断した。経動脈塞栓術後に複雑幻視は消失した。本症例の幻視はDAVFに伴うてんかん発作や皮質の血流変化による可能性を考えた。一般に複雑幻視は、てんかん性幻視は全視野にわたって出現し、一側性の場合は欠損視野内に出現する盲視野内幻視となる。本例は視野欠損を伴わずに一側性の複雑幻視が生じた点、DAVFが複雑幻視を呈した点で、貴重な症例と考えた。

（臨床神経 2020;60:425-428）

Key words：硬膜動静脈瘻，複雑幻視，てんかん，経動脈的塞栓術

はじめに

幻視には、形態のない単純な光などが見える要素性幻視と、人や風景、物体などが見える複雑幻視がある。大脳病変によって生じる複雑幻視には、一側の欠損視野内に幻視が出現する盲視野内幻視と、欠損視野を伴わず全視野にわたり幻視が出現するてんかん性幻視がある¹⁾。我々は、硬膜動静脈瘻（dural arteriovenous fistula; DAVF）により、複雑幻視が、視野欠損を伴わずに一側視野に出現した症例を経験した。本例の幻視症状は、てんかん発作の症状とは最終的には判断できなかったが、その症状の発現機構が臨床所見として重要であり、複雑幻視の病態を理解する上で重要な症例と考え報告する。

症 例

症例：76歳女性

主訴：右視野内に人や果物が見える

既往歴：高血圧。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2018年11月下旬に転倒して頭部を打撲した。12月上旬に車を運転していたところ、センターラインの右側に、ランドセルを担いだ足のない3人の子供が後ろを向いて手を振っている像が見え、車と一緒に移動して追い抜くことができなかった。像は両眼で見え、数秒間持続して消失した。そ

の後も3個の青いミカンが空中に浮いている像やトウモロコシの花が上から落ちてくる像が右視野内に数秒間見えた。幻視はいずれも右視野内のみ出現したが、像の種類に常同性はなかった。精査目的に12月中旬に当科に入院した。

入院時所見：一般身体所見で特記事項はなかった。神経学的所見では意識清明、明らかな視力低下はなかった。対座法で視野欠損はなく、眼球運動制限も認めなかった。Mini Mental State Examination（MMSE）では30点中26点（減点項目：シリアル7、三段階命令、文章理解）であり、ダブルペンタゴンの図形模写は可能であった。

検査所見：血液検査で特記事項はなかった。脳波検査ではT5、P3を焦点とする鋭一過性波を認めた。発作波の後に後続徐波を認めず、てんかん性放電としては特異性に欠けると判断した（Fig. 1）。頭部単純CTでは左側頭葉白質に低吸収域を認めた。頭部単純MRIではT₂強調像やFLAIR像で、左下部側頭葉を中心に左側頭後頭葉白質に散在する高信号域を認め、MRAの元画像では左横静脈洞の血流信号の増強と周囲の微小な血管を認めた（Fig. 2）。CT angiographyでは左後頭葉の脳表や脳溝に拡張した皮質静脈を認めた。また、左S状静脈洞には静脈洞血栓と考えられる造影欠損を認めた。入院7日目に行った脳血管造影法では左後頭動脈を主な流入動脈として左横静脈洞へのシャント形成を認めた（Fig. 3）。脳表静脈への逆流を伴っており、上矢状静脈洞とS状静脈洞へ流出していた。

*Corresponding author: 新潟大学脳研究所神経内科〔〒951-8585 新潟県新潟市中央区旭町通1番町757〕

¹⁾ 新潟大学脳研究所神経内科

²⁾ 新潟大学脳研究所脳神経外科

（Received September 12, 2019; Accepted February 3, 2020; Published online in J-STAGE on May 19, 2020）

doi: 10.5692/clinicalneuro.60.cn-001371

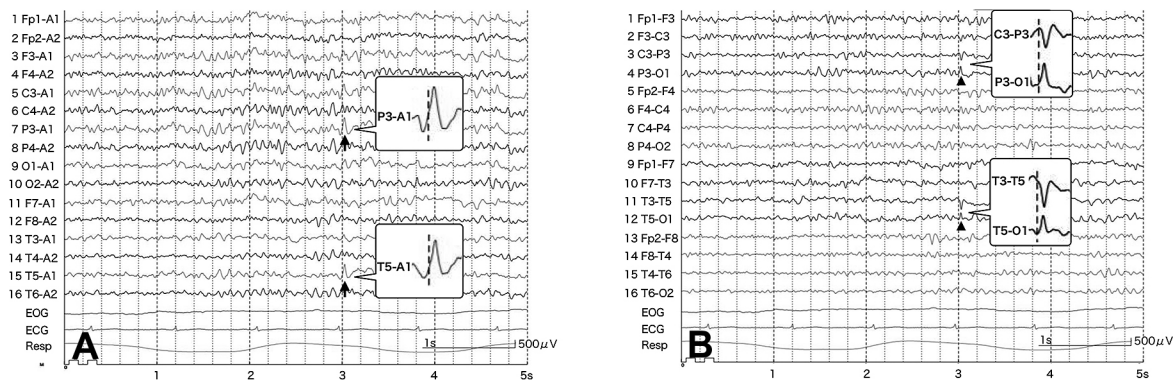


Fig. 1 Electroencephalogram.

(A) Electroencephalogram revealed sharp transients in the left temporal and parietal lobe (arrows). (B) Phase reversals were observed at T5 and P3 (arrowheads).

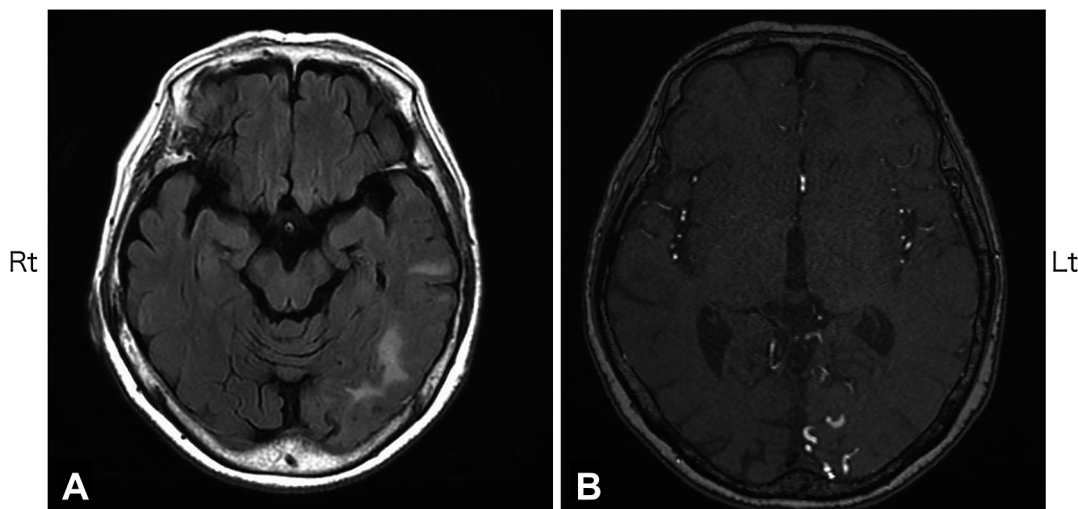


Fig. 2 MRI.

(A) FLAIR images (3 Tesla; TR 10,000 ms, TE 122.98 ms) revealed hyperintensity in the left temporo-occipital lobe. (B) MRA (3 Tesla; TR 19 ms, TE 3.40 ms) revealed linear hyperintensity in the left occipital lobe, which was suspected to signify cortical venous reflux.

入院後経過：外傷を契機に生じた左横静脈洞の DAVF と診断した。皮質静脈逆流を伴い、左後頭葉から側頭葉にかけて静脈性梗塞をきたしていた。入院 10 日目に液体塞栓物質を用いた経動脈的塞栓術を施行した。経過中に抗てんかん薬による治療は行わなかったが、経動脈的塞栓術後に複雑幻視の訴えは消失した。

考 察

本症例は DAVF により、視野欠損を伴わず、一側視野に局限した複雑幻視を認めた。本例の病態として、以下の二つの可能性を考えた。

一つはてんかん性幻視の可能性である。本例は、脳血管造影法で、皮質静脈逆流を伴う DAVF と診断した。DAVF は脳脊髄を覆う硬膜で発生し、皮質静脈逆流を伴う DAVF ではて

んかん発作が生じる²⁾。本例は、頭部 MRI で左下部側頭葉を中心に病変を認め、脳波で T5、P3 を焦点とする鋭一過性波を認めた。このことから症候性てんかんによるてんかん性幻視の可能性を考え、発作焦点として左下部側頭葉を疑った。下部側頭葉皮質は視覚性学習や視覚性記憶に関与し³⁾、実際、複雑幻視の発作中に下部側頭葉皮質の一過性の活動亢進が生じる⁴⁾。また、網膜の部位に対応して大脳皮質へ投射される retinotopic map は、一次視覚野のみでなく、下部側頭葉皮質にも存在する⁵⁾。通常、てんかん性幻視は、全視野に渡るが、本例では一側性であったことが特徴である。本例と同様に、一側性のてんかん性幻視は、後頭葉梗塞を原因とする 1 例のみであり⁶⁾、側頭葉に起源をもつ症例は認められなかった。本例は複雑幻視の側性と側頭葉の retinotopic map との関連を示唆する貴重な症例と考えた。

また、本例は盲視野内幻視の病態を考える上でも示唆に



Fig. 3 External carotid angiography.

Lateral angiogram of the left external carotid artery revealed an arteriovenous shunt from the left occipital artery to the left transverse sinus with cortical venous reflux.

富む症例である。盲視野内幻視は、一側の欠損視野内に幻視が出現する幻視であり、一側性であることが特徴である。この病態として、刺激入力がなくなった視覚連合野の自然発火により、視野欠損部に幻視が生じる解放現象が考えられている⁷⁾。一方で盲視野内幻視の症例の多くで、後頭葉のみでなく頭頂葉や側頭葉まで病変が及んでいることから、側頭・頭頂葉の刺激現象の関与も指摘されている^{8)~10)}。高橋らは、同名性右上四分盲の症例において、右視野の要素性幻視の出現時に左後頭葉に限局したてんかん原性異常波を、複雑幻視の出現時に左優位の全般性てんかん原性異常波を確認している¹¹⁾。以上から、後頭葉から側頭・頭頂葉に拡大するてんかん性刺激が、盲視野内幻視における複雑幻視の病態に関与すると想定した。本例における一側性の複雑幻視の病態を、側頭葉または頭頂葉に起源をもつてんかん発作と考えると、一側性の複雑幻視を呈する盲視野内幻視の病態に、解放現象のみでなくてんかん発作が関与することが示唆される。

一方、本例は脳波所見で発作波の後に後続徐波を認めず、てんかん性放電としては特異性に欠けること、抗てんかん薬による治療効果を確認しなかったことから、病態をてんかん性幻視と断定するには至らなかった。そこで、二つ目の可能性として、血流変化による大脳皮質の機能変化の可能性を考えた。吉村らは、右側頭頭頂葉の髄膜腫摘出後に、視野欠損を伴わずに複雑幻視を呈した症例を報告している¹²⁾。同症例は、術前から抗てんかん薬を使用している最中に幻視を発症した点、頭位変換により幻視が誘発された点から、てんかんの機序の可能性は低く、腫瘍摘出による側頭頭頂後頭葉の血流変化が病態と想定されている¹²⁾。本例は脳血流シンチグラフィを経過中に施行していないが、硬膜動静脈瘻による血流変化が病態に関与している可能性がある。

また、本例は経動脈的塞栓術により幻視が消失した。DAVFは自然退縮する場合もあるが、皮質静脈逆流を伴うものは出血リスクが高く、血管内治療が検討される¹³⁾。DAVFに合併した複雑幻視は、盲視野内幻視の報告があるのみであり、視野欠損を伴わない複雑幻視の報告は、渉猟する範囲でなかった¹⁴⁾。複雑幻視を訴える症例にはDAVFのように治療可能であり、治療により予後が変わり得る疾患が存在するため、十分な画像検査を行うことが臨床的に重要であると考えた。

※著者全員に本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) 山鳥 重. 神経心理学入門. 第1版. 東京: 医学書院; 1985. p. 61-62.
- 2) Cognard C, Gobin YP, Pierot L, et al. Cerebral dural arteriovenous fistulas: clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. *Radiology* 1995;194: 671-680.
- 3) 岩井榮一. 側頭葉と視覚的記憶. *神経進歩* 1988;32:583-596.
- 4) Kazui H, Ishii R, Yoshida T, et al. Neuroimaging studies in patients with Charles Bonnet Syndrome. *Psychogeriatrics* 2009;9:77-84.
- 5) Arcaro MJ, Livingstone MS. Retinotopic organization of scene areas in macaque inferior temporal cortex. *J Neurosci* 2017;37: 7373-7389.
- 6) 浦上裕子, 四宮滋子, 永田貴美子ら. 右後頭葉視中枢梗塞後に幻視 (complex visual hallucination) が反復出現した1症例. *てんかん研究* 1995;13:148-153.
- 7) Lance JW. Simple formed hallucinations confined to the area of a specific visual field defect. *Brain* 1976;99:719-734.
- 8) ケルメル HW (著), 井上有史, 馬屋原健 (訳). 視覚の神経学—中枢性視覚障害の臨床と病態生理. 東京: シュプリンガー・フェアラーク東京; 1990. p. 83-90. (Kölme HW. Die homonymen Hemianopsien-Klinik und Pathophysiologie zentraler Sehstörungen. Berlin: Springer-Verlag; 1988)
- 9) 當間圭一郎, 田口敬子, 池田昭夫ら. てんかん性視覚保続発作に内側側頭葉と頭頂葉の関与が示唆された1例. *臨床神経* 2012;52:651-655.
- 10) Sakamoto Y, Suzuki R, Ohara T, et al. Complex visual hallucinations as the sole manifestation of symptomatic temporo-occipital lobe epilepsy due to old intracerebral hemorrhage. *Seizure* 2014;23:244-246.
- 11) 高橋伸佳, 河村 満. 左側頭・後頭葉病変によるてんかん性複雑幻視. *臨床神経* 1996;36:665-669.
- 12) 吉村政樹, 内山由則, 金子 彰ら. 腫瘍摘出後に一過性有形性幻視をきたした右側頭頭頂部髄膜腫の1例. *Brain Nerve* 2010;62:893-897.
- 13) Hacıbey L, Konstas AA, Pile-Spellman J. Natural history, current concepts, classification, factors impacting endovascular therapy, and pathophysiology of cerebral and spinal dural arteriovenous fistulas. *Clin Neurol Neurosurg* 2014;121:64-75.
- 14) 稲福徹也, 坂井文彦, 坂本智子ら. 硬膜動静脈瘻奇形による半盲視野内幻視の1例. *臨床神経* 1994;34:484-488.

Abstract

Dural arteriovenous fistula causing complex visual hallucinations without an anopsia

Shingo Koide, M.D.¹⁾, Masahiro Hatakeyama, M.D., Ph.D.¹⁾, Masahiro Uemura, M.D., Ph.D.¹⁾,
Bumpei Kikuchi, M.D., Ph.D.²⁾, Hitoshi Hasegawa, M.D., Ph.D.²⁾ and Osamu Onodera, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾ Department of Neurology, Brain Research Institute, Niigata University

²⁾ Department of Neurosurgery, Brain Research Institute, Niigata University

We report the case of a 76-year-old woman who presented with recurrent episodes of complex visual hallucinations in her right visual field without an anopsia. The electroencephalogram showed sharp transients in the left parietotemporal region with phase reversals at T5 and P3. FLAIR MRI revealed hyperintense lesions in the left temporo-occipital lobe, located mainly in the left inferior temporal lobe. Cerebral angiography revealed an arteriovenous shunt from the left occipital artery to the left transverse sinus with cortical venous reflux. The complex visual hallucinations were resolved after transarterial embolization. We therefore hypothesize that this patient's complex visual hallucinations were caused by epileptic seizures or changes in cortical blood flow caused by the cortical venous reflux from the arteriovenous fistula. In general, epileptic hallucinations expand into the bilateral visual field. We reveal that in rare cases, complex visual hallucinations can also be limited to the unilateral visual field without an anopsia. Additionally, we reveal that a dural arteriovenous fistula can cause visual hallucinations without hemianopia.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2020;60:425-428)

Key words: dural arteriovenous fistula, complex visual hallucination, epilepsy, transarterial embolization
