

症例報告

頸髄, 脳幹, 小脳にMRI T2 強調画像で高信号域を呈した S状静脈洞硬膜動静脈瘻の1例

大島幸亮¹⁾ 寺田友昭²⁾ 大久保信治¹⁾ 檜山孝美¹⁾ 小林博雄¹⁾ 工藤 忠¹⁾ 遠藤慎一³⁾ 橋本卓雄⁴⁾

A case of isolated sigmoid sinus dural arteriovenous fistula showing high intensity areas on T2 weighted image in the brain stem, cerebellum, and cervical spinal cord

Kousuke OHSHIMA¹⁾ Tomoaki TERADA²⁾ Shinji OOKUBO¹⁾ Takami HIYAMA¹⁾ Hiroo KOBAYASHI¹⁾
Tadashi KUDO¹⁾ Shinichi ENDO³⁾ Takuo HASHIMOTO⁴⁾

1) Department of Neurosurgery, Ishioka Cardiovascular and Neurosurgical hospital

2) Department of Neurosurgery, Wakayama Rosai Hospital

3) Department of Cardiovascular surgery, Ishioka Cardiovascular and Neurosurgical hospital

4) Department of Neurosurgery, St.Marianna University School of Medicine

●Abstract●

Objective: A rare case of dural arteriovenous fistula (dAVF), which demonstrated high intensity areas in the brain stem, cervical spinal cord, and cerebellum on T2-weighted magnetic resonance imaging, was presented. Its mechanism was discussed in this paper.

Clinical presentation: A 74-year-old female was admitted due to severe dizziness and cerebellar ataxia. Cerebral angiography showed an isolated sigmoid sinus dAVF fed by the ascending pharyngeal, occipital, and tentorial arteries, and draining from the left petrosal vein to the confluence, contralateral superior petrosal sinus, and to the anterior and posterior spinal veins, via the veins around the brain stem and the numerous cerebellar cortical veins.

Intervention: Transvenous embolization was performed using detachable coils through the microcatheter, which was navigated through the occluded left transverse sinus via the transfemoral route. Symptoms improved markedly after endovascular treatment.

Conclusion: In this case, venous hypertension in the brain stem, cerebellum and cervical spinal cord, caused MRI abnormalities. With these MRI findings, dAVF should be included in the differential diagnoses.

●Key Words●

dural arteriovenous fistula, transvenous embolization, venous drainage, venous hypertension

1) 石岡循環器科脳神経外科病院 脳神経外科

2) 和歌山労災病院 脳神経外科

3) 同 心臓血管外科

4) 聖マリアンナ医科大学 脳神経外科

<連絡先: 大島幸亮 〒311-3434 茨城県小美玉市栗又四ヶ1768-29 E-mail: kousuke@rf6.so-net.ne.jp>

(Received April 22, 2008 : Accepted September 10, 2008)

緒言

硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistulas ; dAVF) は硬膜内に局在する異常な動静脈間の交通, 吻合である。この中でも, 特に静脈性高血圧を来し, 血管撮影の所見上, 頭蓋内静脈への逆流を認め, 進行性神経症状を伴う症例は, 可及的すみやかに治療をする必要がある¹²⁾。小脳皮質静脈, 脳幹周囲静脈以外に 前脊髄および後脊髄静脈という稀な流出路を伴い, MRI上, T2強

調画像にて小脳, 脳幹, 頸髄に高信号域の出現を認めた S状静脈洞dAVFの1治療例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

症 例: 74歳, 女性。

主 訴: 浮動性めまい, 嘔吐, 歩行不能。

既往歴, 外傷歴: 特記すべきものなし。

現病歴: 2007年のはじめ頃より浮動性めまいを自覚, 嘔

吐を伴い、少しずつ増悪してきたため、9月に当院を受診した。頭部CT、頭部MRIを施行し、精査加療目的にて入院となった。

入院時神経学的所見：意識清明であり、運動、感覚障害は認めなかった。腱反射正常、脳神経にも異常を認めなかった。左側に強い両側の小脳失調を認め、強い浮動性めまいにて歩行は不可能であった。

神経放射線学的所見：頭部CTでは脳幹、特に延髄と左小脳半球に低吸収域を認めた。頭部MRIのT2強調画像の軸位では、左小脳、延髄に高信号域を認め、矢状断でも橋下部から延髄および頸髄に高信号域を認めた (Fig. 1A, B)。また造影MRI軸位像では、小脳半球表面に多数の異常血管が認められた。

頭部血管撮影の左外頸動脈撮影では、流入血管は上行咽頭動脈、後頭動脈、テント動脈であり、一部S状静脈洞から上錐体静脈洞後方が描出されるが、横静脈洞、上錐体静脈洞の前方、S状静脈洞近位側が閉塞し、描出されなかった (Fig. 2A)。シャントを介するドレナージ経路はすべて錐体静脈を介し、①脳幹の表面(橋横走静脈、腕静脈)、小脳の皮質静脈を通り、小脳虫部静脈から静脈洞交会へと流れるルート、②脳幹の表面(橋横走静脈、腕静脈)を通過して、対側の上錐体静脈洞へのルートと、③脳幹の表面(橋横走静脈、腕静脈)を通過して、一部が下方に還流し、静脈相にて、ゆっくり前脊髄および後脊

髄静脈に流出するルートが観察された (Fig. 2B, C)。病的S状静脈洞は、正常静脈還流としては使用されていなかった。診断はisolated sigmoid sinusのdAVFであった。頭部MRIでのT2強調画像にて、脳幹、頸髄、小脳に静脈性高血圧によると思われる高信号域を認めた。小脳失調症状の改善と将来の出血を予防するためにシャントを閉塞し、静脈性高血圧を解除する必要があると考えた。治療は、経静脈的な塞栓術を考慮した。われわれは、isolated sigmoid sinusに到達するためのアプローチ方法を以下のように検討した。1) まず最も近い左内頸静脈側よりアプローチし、無効なら、2) 対側の横静脈洞から、静脈洞交会経由にてアプローチする方法、それでも無効なら、3) 小開頭して、病的静脈洞を直接穿刺する方法を検討し、準備して治療に臨んだ。

治療経過：局所麻酔下に治療を行った。まず、造影用4Frカテーテルを左外頸動脈に留置した。次に、治療用として右大腿静脈アプローチにて6Frガイドラインカテーテル ENVOY Straight 90cm (Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA) を左内頸静脈に挿入し、Tempo4 (Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA) とガイドワイヤー (0.035-inch, テルモ, 東京) にて、まず同側内頸静脈経由にてアプローチするも、カテーテルをisolated sigmoid sinus内に到達させることができなかった。そこで、対側横静脈洞経由での治療に変更した。6Frガイド



Fig. 1 MRI on admission

A : T2-weighted axial image

High intensity areas in the brain stem and left cerebellar hemisphere are shown.

B : T2-weighted sagittal image

High intensity areas in the medulla oblongata and cervical spinal cord are shown.

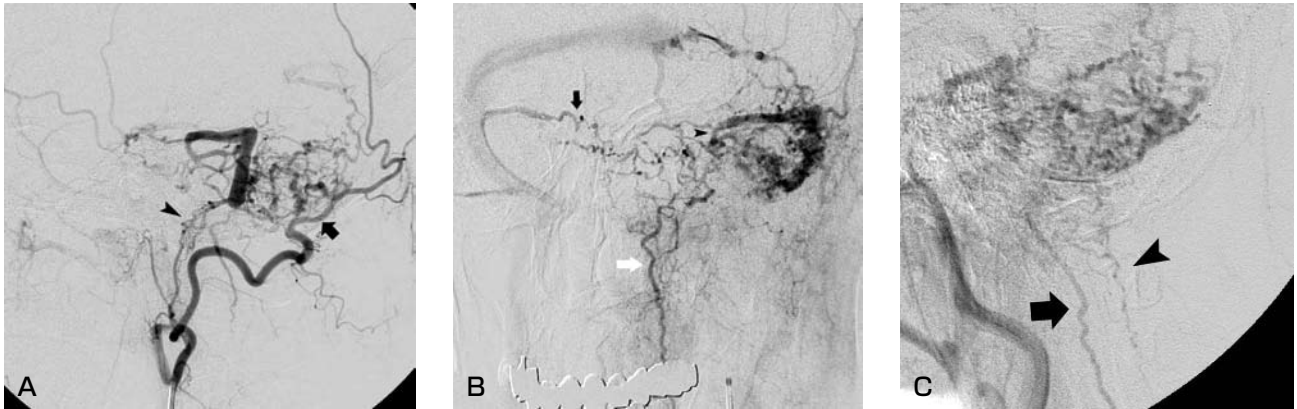


Fig. 2 Preoperative angiograms

A : Lateral view of the left external carotid artery angiogram in the arterial phase

The feeding arteries, occipital artery (arrow), ascending pharyngeal artery (arrowhead) and tentorial artery, and the isolated left sigmoid sinus, are shown.

B : AP view of the left external carotid angiogram in the venous phase

Several venous drainage routes, to the confluence, to the contralateral superior petrosal sinus (black arrow), and to the anterior and posterior spinal vein (white arrow) via the veins around brain stem, and the numerous cerebellar cortical veins from the left petrosal vein (arrowhead) are shown.

C : Lateral view of the left common carotid artery angiogram in the venous phase

The anterior spinal vein (arrow) and posterior spinal vein (arrowhead) are shown.

イングカテーテルを右内頸静脈に挿入し、Tempo4と0.035-inchガイドワイヤーを用い、対側横静脈洞を通り、静脈洞交會に挿入、マイクロガイドワイヤーGT wire double angle (0.016-inch, テルモ, 東京), マイクロカテーテルTransit (Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA)を使用して、閉塞していた左横静脈洞を経由して、isolated sinus内へ到達することができた。

まず、isolated sigmoid sinusの近位部より、以下のコイルを使用して閉塞した。IDC standard 6 mm-20cm (Boston Sci, MA, USA), Cook embolization coil 6 mm-25cm J型 3本, (Cook, Bjaeverskov, Denmark), 同 5 mm-12cm SPIRAL 5本使用, 同 6 mm-15cm SPIRAL, 同 4 mm-10cm SPIRAL, 同 3 mm-9 cm SPIRALの計12本を使用し、シャントの消失を確認して治療を終了した (Fig. 3)。

術後10日のMRIでのT2強調画像矢状断像および軸位断像では、脳幹、頸髄、小脳の高信号域は著明に改善していた (Fig. 4)。

術後はめまい、ふらつきの訴えは著明に改善し、歩行可能となり、独歩にて退院した。

考 察

本症例は、isolated sigmoid sinusに伴うdAVFであり、シャントを介する経路はすべて錐体静脈から脳幹表面や



Fig. 3 Angiography immediately after embolization
A-V fistula disappeared completely.

小脳皮質静脈を通り静脈洞交會へ流れるルート、脳幹表面の静脈を通して対側上錐体静脈洞へ流れるルート、脳幹表面の静脈還流の一部が下方に還流し、前、後脊髄静脈へドレナージするという稀な形態を認めていた。頭蓋内dAVFのうち、spinal perimedullary venous drainageを伴う頻度は明らかにされていないが、比較的稀な形態であり、過去にも約20例程度の報告がみられるのみであ



Fig. 4 MRI 10 days after embolization
High intensity areas in the brain stem and cerebellum almost completely disappeared on the T2-weighted sagittal image.

る^{2-4,7-11,13,14}). いくつかのdAVF分類が報告されているが、本症例は Lalwani分類ではGrade4, Borden分類ではtype II bに分類されると考えられる^{1,6}). また、dAVF分類の中で、spinal perimedullary veinへの流出も考慮しているものにGobinの分類とCognardの分類がある^{3,4}). 前者ではspinal perimedullary veinへの流出を認め、かつmyelopathyを呈しているものとしている。後者では症状は関係なくspinal perimedullary veinへの流出を認めるものとしている。本症例では進行性のmyelopathyを認めず、Cognard Type Vに分類されると考えられた。Type Vの約50%に進行性のmyelopathyが認められ、残りの50%は出血にて発症したと報告されている³).

Gobinらは、5例のspinal perimedullary venous drainageを伴う、頭蓋内dAVFを報告している。すべて、進行性のmyelopathyを伴っていた。うち、3例は脳幹の症状も合併していた⁴). 全例において、詳細な血管撮影所見の記載はなかったが、主要な流出路は、spinal perimedullary veinであった。また、spinal perimedullary veinを流出路とする頭蓋内dAVFの報告の中で、LiらRicilfiらは上位頸髄、脳幹障害で発症した症例を報告している^{7,10}). 佐藤らも、脳幹の虚血症状単独で発症した1例を報告している¹¹). 本症例のようなドレナージをもつ頭蓋内dAVFの報告の中で、浮動性めまいなどの脳幹、

小脳症状のみで発症した症例は過去に数例の報告しかない。本症例では、シャントを介する経路は脳幹表面の静脈から、小脳静脈や対側上錐体静脈洞へ流れるルートが主であり、脳幹表面の静脈還流の一部のみ下方に還流し、脊髄静脈へドレナージしていた。血管撮影でも動脈相早期では、特に脊髄静脈の描出はなく、毛細血管相から静脈相早期にて描出されていた。最もよくみられるmyelopathyが本症例でみられなかったのは、spinal perimedullary veinへの逆流量がそれほど多くなく、症状を来すまでには至らなかったのではないかと推測される。本症例においても、もう少し経過が長ければ、myelopathyを来していた可能性は高かったであろう。

診断については、Bretらが自験例をもとに、過去にspinal perimedullary veinへドレナージする頭蓋内dAVFについて調べているが、脊髄血管撮影を行っても特に問題なく、診断に苦慮して治療が遅れることが多いと報告されている²). Myelopathyを伴ったり、本症例のようにMRIにて脊髄に浮腫性変化を認める例で血管病変の可能性が高いときは、脊髄病変のみではなく頭蓋内dAVFも念頭に置き、頭部血管撮影を行うことが診断への近道と考える。

本症例では画像にて脳幹、小脳、脊髄のT2強調画像で高信号を認めた。これは脳幹、小脳の静脈が本来流出する横静脈洞や上錐体静脈洞などが閉塞し、脳幹、小脳の静脈還流障害が起き、加えてS状静脈洞からdAVFを介する動脈圧が負荷されるため、脳幹、小脳の静脈性高血圧が生じ、同部にvasogenic edemaを来し、上記画像所見を呈したと考えられた。

治療としては、血管内治療を中心とした塞栓術が行われている。通常、経動脈的塞栓術と経静脈的塞栓術のうち、根治性の高い後者が第一選択である¹²). 本症例では血管撮影上、流出路はすべて錐体静脈を介しており、外科的に錐体静脈の離断という方法も考慮された。しかし、われわれは低侵襲であり、直接シャント部の加療ができる根治性の高い血管内治療を選択した。本症例はisolated sigmoid sinusを呈しており、静脈洞内にどのようにしてアプローチするかが問題であった。

アプローチとしては、1) 同側の内頸静脈経由、2) 対側の内頸静脈より対側横静脈洞を通り、静脈洞交会から閉塞横静脈洞を経由する方法、3) 静脈洞に直接穿刺する方法、がある。われわれは1)の方法を行うも、到達することができず、断念して2)の方法を行った。Komiyaらは対側横静脈洞経由にて閉塞静脈洞を通り、

dAVFを治療した2例を報告している⁵⁾。しかし、対側アプローチで罹患静脈洞に到達できない事ことも考え、われわれは静脈洞に直接穿刺できるように、手術の方も準備しておいた。横静脈洞、S状静脈洞のdAVFの症例、特にisolated sinusの場合は、上記の方法を常に留意すべきと思われた。

結 語

前、後脊髄静脈に流出路を有し、MRI T2強調画像で小脳、脳幹、頸髄に高吸収域を呈したS状静脈洞硬膜動脈静脈瘻の1治療例を報告した。本例のようなMRI所見を見た場合に、頭蓋内dAVFも鑑別診断の一つとして念頭に置くべきと思われる。

文 献

- 1) Borden JA, Wu JK, Shucart WA: A proposed classification for spinal and cranial dural arteriovenous fistulous malformations and implications for treatment. *J Neurosurg* 82:166-179, 1995.
- 2) Bret P, Salzmann M, Bascoulergue Y, et al. Dural arteriovenous fistula of the posterior fossa draining into the spinal medullary veins — An unusual cause of myelopathy: case report. *Neurosurgery* 35:965-969, 1994.
- 3) Cognard C, Gobin YP, Pierot L, et al: Cerebral dural arteriovenous fistulas: clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. *Radiology* 194:671-680, 1995.
- 4) Gobin YP, Rogopoulos A, Aymard A, et al: Endovascular treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas with spinal perimedullary venous drainage. *J Neurosurg* 77:718-723, 1992.
- 5) Komiyama M, Ishiguro T, Matsusaka Y, et al: Transfemoral, transvenous embolisation of dural arteriovenous fistula involving the isolated transverse-sigmoid sinus from the contralateral side. *Acta Neurochir (Wien)* 144:1041-1046, 2002.
- 6) Lalwani AK, Dowd CF, Halbach VV: Grading venous restrictive disease in patients with dural arteriovenous fistulas of the transverse/sigmoid sinus. *J Neurosurg* 79:11-15, 1993.
- 7) Li J, Ezura M, Takahashi A, et al: Intracranial dural arteriovenous fistula with venous reflux to the brainstem and spinal cord mimicking brainstem infarction-case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 44:24-28, 2004.
- 8) Partington MD, Rufenacht DA, March WR, et al: Cranial and sacral dural arteriovenous fistulas as a cause of myelopathy. *J Neurosurg* 76:615-622, 1992.
- 9) Philippe B, Martin S, Yves B, et al: Dural arteriovenous fistula of the posterior fossa draining into the spinal medullary veins—an usual cause of myelopathy: case report. *Neurosurgery* 35:965-969, 1994.
- 10) Ricolfi F, Manelfe C, Meder JF, et al: Intracranial dural arteriovenous fistulae with perimedullary venous drainage. Anatomical, clinical and therapeutic considerations. *Neuroradiology* 41:803-812, 1999.
- 11) Satoh M, Kuriyama M, Fujiwara T, et al: Brain stem ischemia from intracranial dural arteriovenous fistula: case report. *Surg Neurol* 64:341-345, 2005.
- 12) 寺田友昭：硬膜動脈静脈瘻。吉田 純，宮地 茂編，脳血管内治療の Do's & Don'ts. 第2版，東京，医学書院，2006，193-212.
- 13) Versari PP, D'Aliberti G, Talamonti G, et al: Progressive myelopathy caused by intracranial dural arteriovenous fistula: report of two cases and review of the literature. *Neurosurgery* 33:914-919, 1993.
- 14) Wrobel CJ, Oldfield EH, di Chiro G, et al: Myelopathy due to intracranial dural arteriovenous fistulas draining intrathecally into spinal medullary veins. *J Neurosurg* 69:934-939, 1988.

要 旨

JNET 2:217-221, 2008

【目的】 頭部MRIのT2画像で脳幹、頸髄、小脳に高信号を認めた1例を報告する。**【症例呈示】** 74歳女性、めまいで入院。MRIで上記所見を認め、血管撮影は流入動脈が上行咽頭、後頭、テント動脈で、isolated sinusを介し、小脳皮質、脳幹周囲、前、後脊髄静脈を流出路とするS状静脈洞硬膜動脈静脈瘻であった。**【治療】** 対側から閉塞左横静脈洞経由で罹患静脈洞に到達、コイルにてisolated sinusを閉塞、短絡は消失した。**【結論】** 本例は脳幹、小脳の正常還流路閉塞に動脈静脈流出路へ動脈圧負荷が加わり、脳幹、頸髄の静脈性高血圧を来した。このようなMRI所見では、特殊な流出路をもつ硬膜動脈静脈瘻も考慮すべきである。