

# 再発性横-S状静脈洞部硬膜動静脈瘻に 合併した静脈洞狭窄に対して経皮的静脈洞形成術を 施行した1例：症例報告

原口健一<sup>1,2)</sup> 松本康史<sup>2)</sup> 近藤竜史<sup>2)</sup> 鈴木保宏<sup>3)</sup>  
宮地 茂<sup>1)</sup> 加藤恭三<sup>4)</sup>

## Percutaneous transluminal sinus angioplasty for transverse sinus-sigmoid sinus stenosis associated with recurrent dural arteriovenous fistula: case report

Kenichi HARAGUCHI<sup>1,2)</sup> Yasushi MATSUMOTO<sup>2)</sup> Ryushi KONDO<sup>2)</sup> Yasuhiro SUZUKI<sup>3)</sup>  
Shigeru MIYACHI<sup>1)</sup> Kyozo KATO<sup>4)</sup>

- 1) Department of Neurosurgery, Nagoya University Graduate School of Medicine  
2) Department of Neuroendovascular Therapy, Kohnan Hospital  
3) Department of Neurosurgery, Iwaki Kyoritsu Hospital  
4) Department of Neurosurgery, Kariya-Toyota General Hospital

### ●Abstract●

**Objective:** Dural arteriovenous fistula (dAVF) is occasionally developed concomitantly or subsequently with sinus thrombosis and stenosis, and the causal relationship between them has been discussed. We report herein a patient of dAVF complicated by severe sinus stenosis who was treated with percutaneous transluminal sinus angioplasty.

**Case:** A 34-year-old woman was treated for transverse sinus-sigmoid sinus (TS-SS) thrombosis and subsequent dAVF. A further dAVF occurred at the confluence associated with left TS stenosis. Intracranial venous circulation was impaired and the shunt flow drained to the deep venous systems. After percutaneous transluminal sinus angioplasty, venous flow congestion clearly decreased. Follow-up angiogram showed neither development of dAVF nor re-stenosis of the sinuses.

**Conclusion:** Percutaneous transluminal sinus angioplasty for sinus stenosis associated with DAVF is effective to improve venous congestion and venous hypertension.

### ●Key Words●

dural arteriovenous fistula (dAVF), percutaneous transluminal sinus angioplasty, thrombosis and stenosis of dural sinus

1) 名古屋大学医学部 脳神経外科

2) 広南病院 血管内脳神経外科

3) いわき市立総合磐城共立病院 脳神経外科

4) 刈谷豊田総合病院 脳神経外科

<連絡先：原口健一 〒466-8550 名古屋市昭和区鶴舞町65 E-mail: xjr1300\_01@yahoo.co.jp>

(Received December 26, 2009 : Accepted March 12, 2010)

## 緒言

硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula ; dAVF) と静脈洞血栓症および静脈洞狭窄は、しばしば合併することが知られ、その因果関係に関して種々の議論が行われてきた。

今回我々は、静脈洞血栓症発症の2年後にdAVFを発症し、治療によりdAVFが一旦治癒したが、1年後に静

脈洞狭窄症とdAVFの異所性再発による静脈還流障害を認めたため、経皮的静脈洞形成術 (percutaneous transluminal sinus angioplasty) を施行した症例を経験した。dAVFと静脈洞血栓症および静脈洞狭窄症の関係、および静脈還流障害を合併するdAVFの治療法について考察を加える。

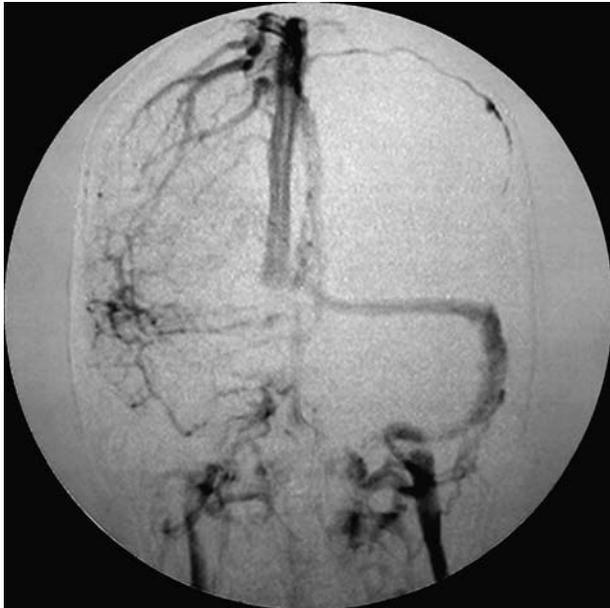


Fig. 1 Venous phase of right internal carotid angiography (anteroposterior view) shows right TS-SS occlusion. No dural arteriovenous fistula (dAVF) is apparent.



Fig. 2 Right occipital artery injection reveals partial re-canalization of right TS-SS and dAVF at the same site.



Fig. 3 After TVE and right TS-SS resection, the venous phase of right internal carotid angiography does not show the right TS-SS.

## 症例呈示

症例：34歳 女性.

主訴：痙攣.

既往歴：特記事項なし.

現病歴：31歳時に全身性強直性間代性痙攣を発症し前医に入院した.

前医での治療経過：Digital subtraction angiography (DSA)で右横-S状静脈洞 (transverse sinus-sigmoid sinus; TS-SS) の閉塞を認め、静脈洞血栓症と診断されたが、この時点ではdAVFは認められなかった (Fig. 1). 抗カルジオリピン抗体陽性で抗リン脂質抗体症候群と診断され、ワーファリンの内服を開始した. 33歳時に痙攣の再発があり、DSAで閉塞していた右TS-SSの部分再開通と、同部位の硬膜動静脈瘻TS-SS dAVFを認めた (Fig. 2). 経静脈的塞栓術 (transvenous embolization; TVE) および右TS-SS切除術を施行し、dAVFは一旦消失した (Fig. 3). 34歳時に再度痙攣を発症し、DSAでdAVFの異所性再発を認めたため当科紹介転院となった.

入院時所見：当科入院時には神経学的異常所見なし.

神経放射線学的所見：DSAでは、confluenceに流入するdAVFと、右TSの著明な狭窄を認めた. 左後頭動脈と両側中硬膜動脈が、confluenceよりわずかに右側の右TS断端にシャントを形成していた. シャント血流の主な流出経路は、左TS-SSから左内頸静脈 (internal jugular vein; IJV) への順行性経路であったが、左TS-SS移行部に狭窄があるため順行性静脈還流が鬱滞し、上矢状静脈洞 (superior sagittal sinus; SSS) のみならず、テント下皮質静脈、および直静脈洞 (straight sinus) を介す

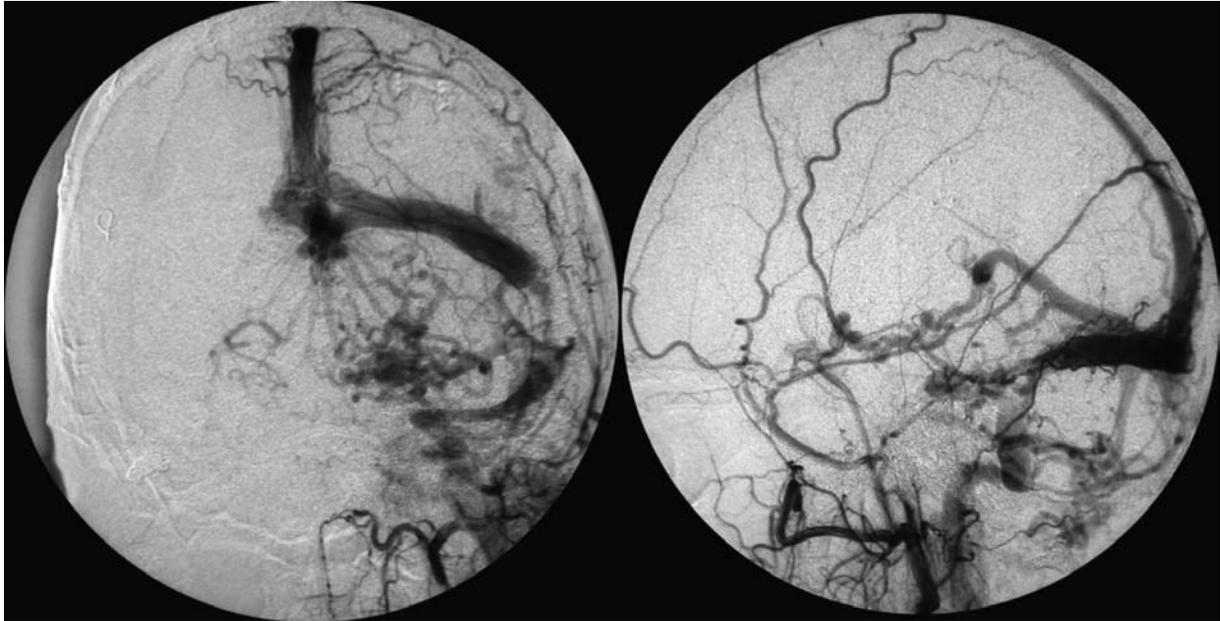


Fig. 4 Left external carotid angiography (anteroposterior and lateral views) shows dAVF developed on the edge of the resected sinus and left TS-SS stenosis. Reflux into the superior sagittal sinus, straight sinus, and cortical veins is observed.

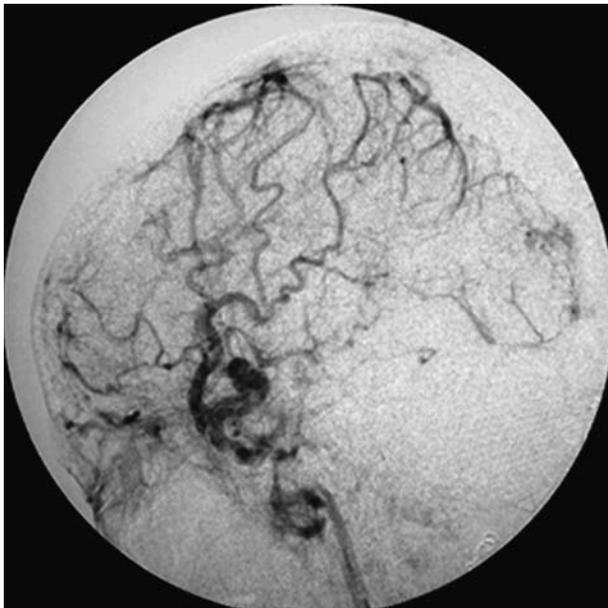


Fig. 5 Left internal carotid angiogram (venous phase) reveals cortical venous congestion due to raised sinus pressure. The SSS is not shown and congested blood flows into cavernous sinus.

る深部静脈へのrefluxが著明であった (Fig. 4)。左内頸動脈造影ではSSSは造影されず、主な静脈還流路は海綿静脈洞への流出となっており、頭蓋内静脈還流の鬱滞を認めた (Fig. 5)。

脳血管内治療：左TS-SS狭窄が静脈還流障害を助長し

ていると考え、dAVFの根治術に先立って、経皮的静脈洞形成術を施行した。左大腿動脈から診断用5Frカテーテルを挿入し左外頸動脈に留置した。右大腿静脈に8Frシースを挿入し、8Fr GUIDER (Boston Scientific, Natick, MA, USA) を左IJVに留置した。0.035inガイドワイヤーをSSSまで挿入し、PTAバルーンSynergy 8.0×20mm (Boston Scientific, Natick, MA, USA) を狭窄部まで進め、8 atmで30秒間拡張した (Fig. 6)。このときマイクロカテーテルを用いて、狭窄部近位、遠位部においてsinus圧測定を行った。

## 結 果

左TS-SS狭窄は改善し、狭窄部前後の静脈圧格差はそれぞれ65/50mmHgと24/21mmHgから37/26mmHgと19/16mmHgに減少した。シャント血流のSSSへの逆流は消失し、内頸動脈撮影上、静脈鬱滞は改善した (Fig. 7)。30分経過後も再狭窄の徴候がなかったため、ステント留置はしなかった。

周術期は前医からのワーファリン 3 mgの内服を継続し、術前のPT-INRは1.69であった。抗血小板薬は使用しなかった。3週間後の血管撮影でも再狭窄やdAVFの増悪は認めず、左後頭動脈の経動脈的塞栓術を追加した。さらに3ヵ月後のガンマナイフ施行時の血管撮影でも左TS-SSは良好に開存していた。

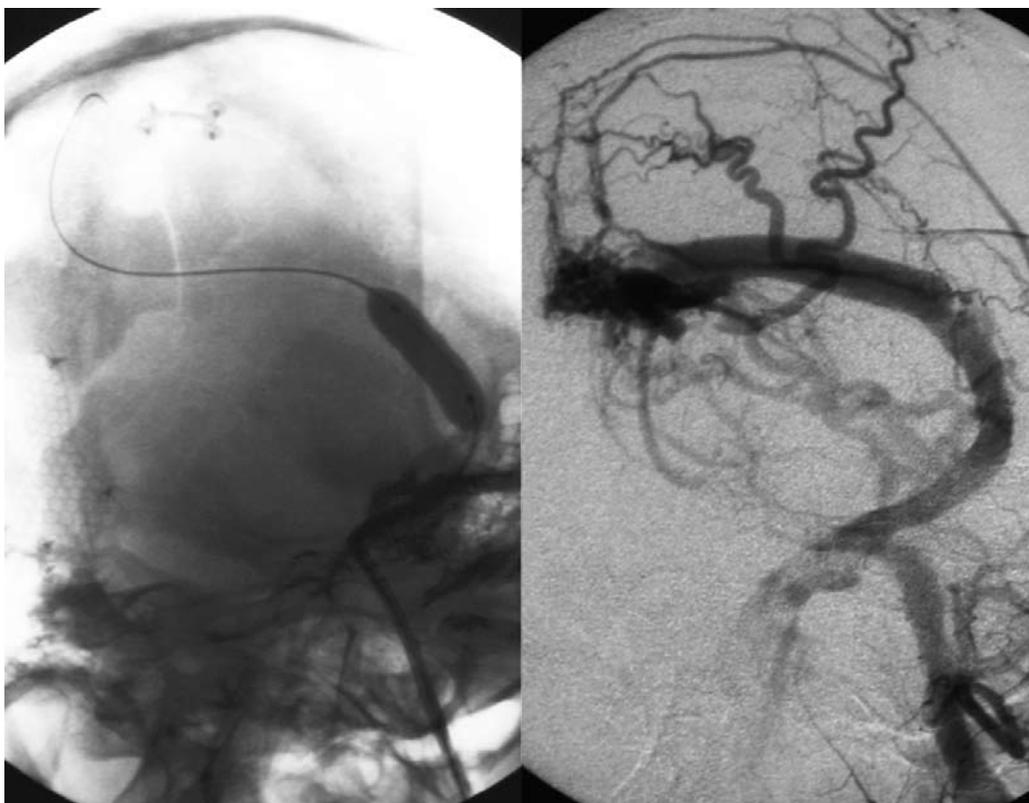


Fig. 6 Left carotid angiography (left anterior oblique view) shows stenosis of the left TS-SS expanded by a balloon catheter. Reduction of intravenous pressure upstream of the sinus was confirmed after procedures.



Fig. 7 Left carotid angiogram after percutaneous transluminal sinus angioplasty shows improved cortical venous flow. Antegrade flow into the SSS is visualized.

## 考 察

### 1. dAVFと静脈洞血栓症および狭窄症の関係

本症例のように、dAVFに静脈洞血栓症および狭窄症が合併する例があり、その因果関係について従来数多くの仮説が報告され、議論がなされてきた。

dAVFが原因となって静脈洞血栓症および狭窄症が発生するという説では、その機序としてdAVFによってもたらされた静脈洞内乱流が静脈洞内皮細胞を損傷したり、逆に静脈洞内血流が停滞したりすることによって血栓が形成される可能性が指摘されている<sup>2)</sup>。この乱流によりdAVFが新たなdAVFを形成し、多発dAVFの成因になるという意見もある<sup>15)</sup>。一方で静脈洞血栓症および狭窄症がdAVFの原因となるという意見も多く、その中では静脈洞内の血栓が器質化してarteriovenous shuntが発達しdAVFに移行する可能性や、静脈圧上昇により還流路としてのdAVFが形成されるという機序があげられている<sup>3)</sup>。最近では後者を支持する意見が多い<sup>9)</sup>が、Wakamotoら<sup>17)</sup>は1症例の自然経過を観察し、dAVFと静脈洞血栓症は時期により原因・結果関係が逆転する可

Table 1 Clinical summary of stenting in patient with transverse-sigmoid sinus stenosis

Authors & Year	No. of Patients	Disease Complicated	Complications	Angiographical Follow-up (mos)	Restenosis
Malek, et al., 1999	1	IIH	none	3	none
Murphy, et al., 2000	1	dAVF	none	10	none
Higgins, et al., 2002	1	IIH	none	12	none
Higgins, et al., 2003	12	IIH	none	2-26	none
Ogungbo, et al., 2003	1	IIH	none	12	none
Owler, et al., 2003	4	IIH	none	5-12	none
Tsumoto, et al., 2003	1	dAVF	none	6	1
Rajpal, et al., 2005	1	IIH	none	6	none
Levrier, et al., 2006	10	dAVF	2	20.8	1
Donnet, et al., 2008	10	IIH	none	12	none

dAVF : dural arteriovenous fistula IIH : idiopathic intracranial hypertension

能性をあげ、これらの病態はきわめて複雑に関与し合い、その理解にはより長期の経過を観察することが必要であると述べている。

本症例はdAVFと静脈洞血栓症および狭窄症の時間的変化をとらえることができ、その意味でこれらの関係を考察するにあたり興味深い。すなわち当初は静脈洞血栓症単独であったものが2年後にdAVFを発症し、一旦dAVFが治癒した後、再度静脈洞狭窄症とdAVFを発症している。この静脈洞狭窄症の治療後にはdAVFの増悪を認めていない。この時間経過から、本症例では静脈洞血栓症および狭窄症がdAVFの病因に深く関与していると考えられる。

dAVF発生に関して静脈圧の上昇が重要であるという意見は、最近の報告でも多くなってきている。Vilelaら<sup>16)</sup>は頭蓋内腫瘍により静脈洞血栓症とdAVFが発生した2例を報告し、そのいずれにおいても静脈洞閉塞部から離れた場所にdAVFが発生しており、静脈洞閉塞症または狭窄症単独ではdAVFの原因にはならない可能性を述べている。またKusakaら<sup>6)</sup>も横静脈洞血栓症後にdAVFが発生した症例を報告し、この症例でもdAVF発生部位は閉塞部位から離れており、閉塞部より上流の静脈圧は上昇していたことを示した。彼らは持続した静脈圧上昇がdAVFの形成・拡張に重要であり、血栓症そのものは静脈圧上昇の原因のひとつにすぎない可能性を指摘している。本症例でもdAVF発生部位と静脈洞閉塞部位は離れており、静脈洞形成術施行前は著明な静脈圧上昇を示していた。dAVFを伴わない単独の静脈洞血栓症および狭窄症の症例では、実際は静脈還流障害のみで静脈圧上昇は伴っていないことも考えられる。

## 2. 静脈洞血栓症および狭窄症に対する経皮的静脈洞形成術の有用性

静脈洞血栓症および狭窄症に対する治療としての静脈洞拡張術、静脈洞内ステント留置術は、近年の血管内治療技術・デバイスの進化に伴い増加し、その報告が多くみられるようになった。我々が渉猟した限りでは42例のTS-SS内ステント留置症例報告がある<sup>1,4,5,7-14)</sup>。このうち12例はdAVFに合併した静脈洞血栓症・狭窄症に対して、残り30例は特発性頭蓋内圧亢進症 (idiopathic intracranial hypertension) に合併した静脈洞血栓症・狭窄症に対しての治療であるが、両者とも静脈還流障害による静脈圧上昇により発症し、これを改善することを治療目的としている。これらの報告では概ね良好な結果が得られているが、合併症報告も散見される (Table 1)。Tsumotoら<sup>14)</sup>は治療後6ヵ月の経過観察後に再狭窄を来し、脳出血を発症した症例を報告している。この症例では血管内エコー (intravascular ultrasound ; IVUS) により、再狭窄後のステント内腔に内膜増殖とみられる hyper-echoic tissue を観察している。これは冠動脈ステント留置後において再狭窄のみられる過程と同様であり、頭蓋内血管に対しても薬剤溶出ステントの開発により再狭窄を予防できる可能性を述べている。Levrierら<sup>7)</sup>はdAVFに合併した10例のTS-SS狭窄に対しステント留置術を施行し、このうち2例での合併症を報告している。1例は術後下位脳神経障害であり、半年で症状は消失している。もう1例では術後脳出血を発症している。この症例では術後抗血小板薬を投与しておらず、人工物であるステントのメッシュ部分が皮質静脈の流出口で血栓化を促進し、静脈閉塞から脳出血を来したと推測している。

彼らは拡張した静脈閉塞予防のための抗血小板薬の重要性を指摘し、術後少なくとも3ヵ月は継続することを推奨している。以上の報告はいずれも数年以内の追跡期間での成績であり、今後より多くの症例数と長期の経過観察により本治療の有用性を検討することが必要であろう。

本症例では経皮的静脈洞形成術を施行するにあたりステント留置も行い得るよう準備したうえで手技を進めたが、バルーンにより良好な拡張を得、静脈鬱滞は改善し、静脈洞内圧は低下したため、血栓性合併症の可能性を考え改めてステント留置は施行しなかった。長期予後は未だ不明であるが現在のところ再狭窄を含めた合併症は発生しておらず、静脈洞拡張術のみで十分な拡張が得られた場合にはステント留置を行わない選択肢もあると思われる。

## 結 論

dAVFと静脈洞血栓症および狭窄症を合併し、経皮的静脈洞形成術を施行した1例を報告した。頭蓋内静脈圧上昇はdAVFの原因に深く関与し、その発生に重要な役割を果たしている可能性が高いと考えられた。dAVFに合併した静脈圧上昇を伴う静脈洞血栓症および狭窄症に対し、経皮的静脈洞形成術は有用であると考えられた。

## 文 献

- 1) Donnet A, Metellus P, Levrier O, et al: Endovascular treatment of idiopathic intracranial hypertension: clinical and radiologic outcome of 10 consecutive patients. *Neurology* 70:641-647, 2008.
- 2) Graeb DA, Dolman CL: Radiological and pathological aspects of dural arteriovenous fistulas. Case report. *J Neurosurg* 64:962-967, 1986.
- 3) Hamada Y, Goto K, Inoue T, et al: Histopathological aspects of dural arteriovenous fistulas in the transverse-sigmoid sinus region in nine patients. *Neurosurgery* 40:452-456, 1997.
- 4) Higgins JN, Owler BK, Cousins C, et al: Venous sinus stenting for refractory benign intracranial hypertension. *Lancet* 359:228-230, 2002.
- 5) Higgins JN, Cousins C, Owler BK, et al: Idiopathic intracranial hypertension: 12 cases treated by venous sinus stenting. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 74:1662-1666, 2003.
- 6) Kusaka N, Sugiu K, Katsumata A, et al: The importance of venous hypertension in the formation of dural arteriovenous fistulas: a case report of multiple fistulas remote from sinus thrombosis. *Neuroradiology* 43:980-984, 2001.
- 7) Levrier O, Metellus P, Fuentes S, et al: Use of a self-expanding stent with balloon angioplasty in the treatment of dural arteriovenous fistulas involving the transverse and/or sigmoid sinus: functional and neuroimaging-based outcome in 10 patients. *J Neurosurg* 104:254-263, 2006.
- 8) Malek AM, Higashida RT, Balousek PA, et al: Endovascular recanalization with balloon angioplasty and stenting of an occluded occipital sinus for treatment of intracranial venous hypertension: technical case report. *Neurosurgery* 44:896-901, 1999.
- 9) 松本康史, 江面正幸, 古井英介, 他: 硬膜動静脈瘻の成因. 硬膜動静脈瘻-脳血管内治療を中心に-. 第14回脳血管内治療仙台セミナー講演集. 27-33, 2006.
- 10) Murphy KJ, Gailloud P, Venbrux A, et al: Endovascular treatment of a grade IV transverse sinus dural arteriovenous fistula by sinus recanalization, angioplasty, and stent placement: technical case report. *Neurosurgery* 46:497-501, 2000.
- 11) Ogungbo B, Roy D, Gholkar A, et al: Endovascular stenting of the transverse sinus in a patient presenting with benign intracranial hypertension. *Br J Neurosurg* 17:565-568, 2003.
- 12) Owler BK, Allan R, Parker G, et al: Pseudotumour cerebri, CSF rhinorrhoea and the role of venous sinus stenting in treatment. *Br J Neurosurg* 17:79-83, 2003.
- 13) Rajpal S, Niemann DB, Turk AS: Transverse venous sinus stent placement as treatment for benign intracranial hypertension in a young male: case report and review of the literature. *J Neurosurg* 102(3 Suppl):342-346, 2005.
- 14) Tsumoto T, Miyamoto T, Shimizu M, et al: Restenosis of the sigmoid sinus after stenting for treatment of intracranial venous hypertension: case report. *Neuroradiology* 45:911-915, 2003.
- 15) Ushikoshi S, Kikuchi Y, Houkin K, et al: Multiple dural arteriovenous fistulas. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 38:478-484, 1998.
- 16) Vilela P, Willinsky R, terBrugge K: Dural arteriovenous fistula associated with neoplastic dural sinus thrombosis: two cases. *Neuroradiology* 43:816-820, 2001.
- 17) Wakamoto H, Miyazaki H, Shinoda A, et al: The natural history of a dural arteriovenous fistula associated with sinus thrombosis: a case report. *No Shinkei Geka* 27:563-568, 1999.

## 要 旨

**【目的】**硬膜動静脈瘻 (dAVF)と静脈洞血栓症・狭窄症の合併例に対する経皮的静脈洞形成術の有用性を報告した。**【症例】**横-S状静脈洞血栓症とdAVFの治療歴を持つ34歳女性。dAVFの再発および対側横-S状静脈洞高度狭窄を認め、頭蓋内静脈還流は鬱滞していた。狭窄部に対して経皮的静脈洞形成術を施行し、順行性の静脈還流を得ることができた。術後経過は良好で、二次治療の追加によりdAVFの消退および静脈洞の開存が得られている。**【結論】**静脈洞血栓症・狭窄症に続発するまたは合併するdAVFに対し、経皮的静脈洞形成術は有用である。本例におけるdAVFと静脈洞血栓症・狭窄症との経時的関係についても考察した。