

静脈洞狭窄に伴う頭蓋内圧亢進に対してステント留置術を施行した一例

山口玲¹⁾ 佐藤晃之¹⁾ 藤巻広也¹⁾ 朝倉健¹⁾

1) 前橋赤十字病院脳神経外科

Address correspondence:

連絡先：〒375-0014 群馬県前橋市朝日町3-21-36

前橋赤十字病院脳神経外科 山口玲

電話番号：027-224-4585

E-mail: rei.yamaguchi@maebashi.jrc.or.jp

Key words: 横静脈洞狭窄 頭蓋内圧亢進 ステント留置術

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関誌「JNET Journal of Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によって、国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約致します。

要旨

(目的)

静脈洞狭窄に伴う頭蓋内圧亢進による慢性頭痛症例を経験した。狭窄部位に対してステント留置術を行ったところ、症状に改善が得られたため報告する。

(症例)

慢性頭痛が主訴の33歳男性。MRで右横静脈洞と右後頭静脈洞狭窄を認めた。腰椎穿刺で頭蓋内圧亢進を認めた。保存的加療後に腰椎腹腔短絡術を施行するも症状の改善を認めなかった。脳血管撮影時に静脈圧測定施行。頭蓋内圧亢進と狭窄前後での静脈圧較差を認めたため、ステント留置術を施行した。術後頭痛の改善が得られた。

(考察)

頭蓋内圧亢進症例に横静脈洞狭窄が原因となっていることが稀にある。内科的治療、髄液短絡術不成功例では試みるべき治療法であると考えらる。

緒言

良性頭蓋内圧亢進症は慢性頭痛の原因疾患として知られている。最も多い原因は肥満であるが、原因を同定できないことも多い¹⁾。我々は多発静脈洞狭窄に伴う頭蓋内圧亢進による慢性頭痛症例を経験した。静脈圧測定を行うことにより、頭蓋内圧上昇と狭窄部前後での圧較差を認めた。狭窄部位に対してステント留置術を行ったところ、症状の改善が得られたため報告する。

症例提示

症例は33歳男性でアトピー性皮膚炎の既往あり。薬剤アレルギーなし。慢性頭痛を主訴に当院を紹介された。頭全体が割れるような持続性の強い頭痛で、嘔気、嘔吐、食欲低下を伴っていた。体位により症状の変動は認めなかった。Magnetic resonance (MR) venographyで右横静脈洞と右後頭静脈洞狭窄を認めた (Fig. 1A)。MR imagingで脳室拡大は認めず水頭症は否定的 (Fig. 1B)、硬膜増強像などの脳脊髄液減少症を疑わせる所見は認めなかった (Fig. 1C)。腰椎穿刺による髄液圧測定では23~25 cmH₂Oと頭蓋内圧亢進を示し、髄液排除により24時間程度の頭痛改善が得られた。保存的加療を行うも症状の改善が得られず、初診から1ヶ月後に腰椎腹腔短絡術(LPS)施行。術後、頭痛は改善するも腹痛、会陰部痛が出現。根症状を疑い脊髓腔内のカテーテルを2cm程度引き抜いて再固定したが、症状の改善は認めなかった。そのため、カテーテルの材質によるアレルギーも考慮した。鎮痛剤や抗アレルギー薬を投与するも改善が得られず術後2ヶ月でシャント抜去。シャント抜去後は腹痛、会陰部痛は消失したが頭痛が再燃した。シャント術後の腹痛、会陰部痛の病態が不明であったため、脳室腹腔短絡術(VPS)がLPSよりも有効であるとは考えられなかった。シャント抜去術1ヶ月後に右眼視力が0.7へ低下してきた。眼底所見で両側のうっ血乳頭を認め、頭蓋内圧亢進による視機能障害と診断された。静脈圧測定目的に脳血管撮影を施行した。

(脳血管撮影)

局所麻酔下に検査施行。右横静脈洞部に数珠状の重度狭窄を認めた(Fig. 2)。右S状静脈洞へは上矢状静脈洞(SSS)からよりも右Labbe静脈からの灌流が早く、遅れてSSSから右横静脈洞と右後頭静脈洞への流出を認めた。右後頭静脈洞にも狭窄を認めた。左横静脈洞へは直静脈洞からの流出が主で静脈洞交会の交通は明らかではなかった。左内頸動脈撮影でも同様の所見が得られた。5Fr Envoy(J&J, 東京)をガイディングとし、Prowler Select Plus(J&J, 東京)を狭窄している右横静脈洞経路でSSS後半部まで誘導。収縮期静脈圧はSSS後半部30cmH₂O、横静脈洞遠位部32.6cmH₂O、横静脈洞近位部20.4cmH₂O、内頸静脈(IJV)15cmH₂Oであり、狭窄部前後の圧較差は15cmH₂Oであった(Table 1)。頭蓋内圧亢進と狭窄前後での静脈圧較差を認めたため、横静脈洞狭窄の解除を目的にステント留置術を計画した。頸動脈ステントを使用するために、適応外使用について院内倫理委員会の承認を得た。

(血管内手術)

術前1週間前よりアスピリンとクロピドグレルのdual antiplatelet therapy(DAPT)とした。全身麻酔下に両側大腿部より動脈と静脈ヘースを留置。動脈側はコントロール撮影用に右内頸動脈へ留置した。8Fr Brite Tip(J&J, 東京)を右IJVへ留置。3.0mm x 40mm SLEEK(J&J, 東京)で前拡張を行った。バルーンは拡張するが、全く元の状態にrecoilした。8mm x 30mm Precise(J&J, 東京)を狭窄部へ直接誘導し展開すると

良好な拡張が得られた(Fig. 3)。圧較差を測定するとSSS後半部13.6cmH₂O、横静脈洞遠位部12.2cmH₂O、横静脈洞近位部12.2cmH₂O、IJV 10.9cmH₂Oであり、狭窄部前後の圧較差は2.7cmH₂Oに低下した(Table 1)。SSSと右Labbe静脈の灌流速度はほぼ同じとなった。

術後経過：周術期合併症なく経過。術後1週間で頭痛は術前の1割程度に軽減。新たに前頭部に頭痛を生じたが自然軽快した。術後1ヶ月目でうっ血乳頭は消失した。術後3ヶ月目に脳血管撮影を行いステントの良好な開存を確認できたため、クロピドグレルのみのsingle antiplatelet therapy (SAPT)へ変更した。また、腰椎穿刺を行い17cmH₂Oと術前より低下していた。以後、造影computed tomography (CT)で定期的なステントの開存を確認し、術1年後に頭痛が消失した。

考察

病態機序が不明の頭蓋内圧上昇に伴う疾患群を特発性頭蓋内圧亢進症と定義される。若年の肥満女性に多く発生する。症状は頭痛、視力障害、脳神経障害、拍動性耳鳴、頸背部痛と多彩である。既知の画像診断では器質的異常を認めず、脳血流の増大、静脈流出路障害、肥満に関連した中心静脈圧上昇などが病因として示唆されている。治療として肥満に対する減量指導を行うことが多い^{1), 2)}。症状が改善しない場合は髄液短絡術を考慮しても良いとされる³⁾。器質的な病態として静脈洞狭窄が原因となる場合がある。腫瘍性病変、血管障害性病変以外で静脈洞狭窄を起こす病態

として大きなクモ膜顆粒、異所性脂肪、静脈側への微小な脳ヘルニアなどが報告されている⁴⁾。静脈還流が原因となる頭蓋内圧亢進症例は画像検査上静脈洞狭窄を認めるのみで、脳室拡大所見を呈さず、狭窄の原因となる疾患が描出されず病態の理解が極めて困難である。本症例は静脈洞交会に左右の交通が明らかではなく、SSSからの流出路である右横静脈洞と後頭静脈洞の両方に狭窄を認めており、流出路障害に伴う頭蓋内圧亢進であると考えられた。ステント留置により静脈洞狭窄を解除することで臨床症状の改善が得られた。本症例は保存的加療抵抗性でありLPSを施行。しかしながらLPSにより腹痛、会陰部痛が出現したために抜去した。脊髄腔内のカテーテル位置の変更を行うも症状の改善が得られなかった。アトピー体質でもあり根症状よりはアレルギー性が疑われた。VPS不成功例の原因としてシリコンアレルギーが報告されている⁵⁾。LPS留置中は鎮痛薬、抗アレルギー薬の内服も行ったが、改善せず別の治療手段を選択せざるを得なかった。

Kingらが頭蓋内圧亢進症例に横静脈洞狭窄が存在し狭窄前後での圧較差を認めることを最初に報告した⁶⁾。Higginsらが横静脈洞狭窄による頭蓋内圧亢進症に対してステント留置術を初めて行った⁷⁾。Telebらによる19の報告で207手術例をまとめたreviewでは、頭痛は81%、うっ血乳頭は90%で術後に改善が得られている。狭窄より遠位の平均静脈洞圧は術前30.3 mmHgから術後に15 mmHgへ低下。また、平均静脈洞圧較差は術前18.5 mmHgから術後に3.2 mmHgへ低下。また重大な合併症として硬膜下血腫、血管穿孔、後腹膜出血の3例が報告されている²⁾。

4年間の観察期間でステントの開存率は98.7%とされる²⁾。静脈洞狭窄の再発を認めた症例はステント外に発生していた⁸⁾。ステント開存例での臨床症状の再発にVPSを施行した例が報告されている²⁾。Table 2に表す項目を、彼らは横静脈洞狭窄による頭蓋内圧亢進症に対するステント治療の基準として提案している²⁾。本症例は彼らのMajor criteriaをすべて満たし、MR上での重度横静脈洞狭窄、LPS不成功の2点でMinor criteriaを満たしている。

実際に使用するステントとしてWallstent (Boston, 東京), Precise (J&J, 東京)といった頸動脈ステントを使用した報告が多い。経皮的動脈形成術(PTA)のみの報告は渉猟し得た限り見当たらない。本症例でも、PTAでは容易に再狭窄してしまった。静脈洞壁はPTAのみでは継続的な拡張が得られない。適切なステント径についての推奨はないが、狭窄前後の正常静脈洞壁径に合わせることで問題はないようである。過去全ての論文で抗血小板剤が使用されており、Telebらによる診断基準からDAPTが必要であるという解釈がなされており、我々も術前1週間前よりDAPTとした。静脈洞はhigh flow vesselという考え方に依ったものである。術後1週間程度の頭痛はステント留置による硬膜の伸展痛であるとされる⁹⁾。術後より同側前頭部に生じ、自然軽快するとされる⁹⁾。頭蓋内圧亢進の頭痛とは明らかに異なる頭痛であり、鑑別は容易である。

横静脈洞狭窄による頭蓋内圧亢進に対するステント留置術は有効な治療法ではあるが、長期的利益が定まっていないとする慎重

派の意見¹⁰⁾があるように一般的に受け入れられてはいない。本治療には以下の問題点がある。一点目は占拠性病変を伴わない横静脈洞狭窄が後天的に発生する病理が不明であり、留置ステントが長期に亘り有効な拡張が継続されるかわからない点。二点目はDAPTの継続期間が不明確である。若年者が多い為、長期のDAPTは出血性合併症の発症率を症状させる可能性がある。三点目は外科的にステントを取り除くことが困難である点。髄液短絡術では抜去することが可能である。これら未解決の問題はあるが、治療に難渋している患者にとっては福音となる治療法であるのも事実である。最近10年間で本治療は注目されるようになってきたと肯定的な意見¹¹⁾があり、Ahmedらは本治療法で頭蓋内圧亢進症52例中49例の症状を改善させ、良好な治療成績を報告している⁹⁾。

また、医療費の側面から比較した報告では髄液短絡術と本治療では、ステント留置術の方が経済的という結果が報告された¹²⁾。よって、内科的治療、髄液短絡術不成功例では試みるべき治療法であると考ええる。

結語

静脈洞狭窄に伴う頭蓋内圧亢進症症例で経静脈的アプローチによるステント留置術で症状の改善が得られた一例を経験した。内科的治療、髄液短絡術により治療効果が得られない場合は本治療法を考慮してもよいと考える。治療の適応を決める上では、静脈圧測定が必須である。

利益相反開示

筆頭筆者及び共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Markey KA, Mollan SP, Jensen RH, et al.
Understanding idiopathic intracranial hypertension: mechanisms, management, and future directions. *The Lancet Neurology* 2016; 15: 78-91
- 2) Teleb MS, Cziep ME, Lazzaro MA, et al. Idiopathic intracranial hypertension: A systematic analysis of transverse sinus stenting. *Interv Neurol* 2013; 2: 132-43
- 3) Julayanont P, Karukote A, Doungporn Ruthirago D, et al. Idiopathic intracranial hypertension: ongoing clinical challenges and future prospects . *J Pain Res* 2016; 9: 87-99
- 4) Owler BK, Parker G, Halmagyi M, et al. Pseudotumor cerebri syndrome: venous sinus obstruction and its treatment with stent placement. *J Neurosurg* 2003; 98: 1045-55
- 5) Hussain NS, Wang PP, James C, et al. Distal

- ventriculoperitoneal shunt failure caused by silicone allergy. J Neurosurg 2005; 102: 536-539
- 6) King JO, Mitchel PJ, Thompson KR, et al. Cerebral venography and manometry in idiopathic intracranial hypertension. Neurology 1995; 45: 2224-8
- 7) Higgins JNP, Owler BK, Pickard JD. Venous sinus stenting for refractory benign intracranial hypertension. Lancet 2002; 359: 228-30
- 8) Winters HS, Parker G, Halmagyi GM et al. Delayed relapse in pseudo cerebri due to new stenosis after transverse sinus stenting. J NeuroIntervent Surg 2015; 00: 1-3
- 9) Ahmed RM, Wilkinson M, Parker GD, et al. Transverse sinus stenting for idiopathic intracranial hypertension: A review of 52 patients and of model predictions. AJNR 2011; 32: 1408-14
- 10) Wakerly BR, Tan MH, Ting EY Idiopathic intracranial hypertension. Cephalagia 2015; 35: 248-61
- 11) Elder BD, Goodwin CR, Kosztowski TA, et al. Venous sinus stenting is a valuable treatment for fulminant idiopathic intracranial hypertension. J Clin Neurosci 2015; 22: 685-9

12) Ahmed RM, Zmudzki F, Parker GD, et al. Transverse sinus stenting for pseudotumor cerebri: A cost comparison with CSF shunting. AJNR 2014; 35: 952-8

Table 1

ステント留置術前後の静脈圧測定結果。術前の最高静脈圧が32.6 cmH₂O、圧較差が15 cmH₂Oであったが、術後はそれぞれ12.2 cmH₂O、圧較差が2.7 cmH₂Oと改善を認めた。

Table 2

Telabらが論文上で提案した診断基準。

Figure 1

(A) MR venography. 右横静脈洞と後頭静脈洞にflow gapを認め重度狭窄示している。(B) T2強調画像. 脳室拡大を認めない。

Figure 2

右内頸動脈タウン撮影静脈相早期(A)、静脈相後期(B)と左内頸動脈撮影正面(C)。右Labbe静脈よりも遅れてSSSから右横静脈洞と右後頭静脈洞への流出を認める。左横静脈洞へは直静脈洞からの流出が主で静脈洞交会の交通は明らかではない。側面

volume rendering像(D)。右横静脈洞と右後頭静脈洞の重度狭窄を認める。

Figure 3

(A) Preciseを横静脈洞部へ留置している。脳血管撮影正面像(B)と側面像(C)で横静脈洞狭窄は解除され、良好な拡張が得られた。

	術前 (cmH ₂ O)	術後 (cmH ₂ O)
SSS後半1/3	30	13.6
静脈洞交会	30	12.2
横静脈洞遠位	32.6	12.2
最狭窄部	32.6	12.2
横静脈洞近位	20.4	12.2
横-S状静脈洞移行音	16.3	12.2
S状静脈洞	15	10.9
頸静脈球	15	-
内頸静脈	15	10.9
压較差	15	2.7

Table 1

Major criteria (all required for qualification)

Failed maximal medical therapy or fulminant course refractory to medical treatment with rapidly worsening vision

Presence of pressure gradient across the stenosis ≥ 8 mmHg

Pressure ≥ 22 mmHg (30cmH₂O)

Visual changes, papilledema, or other focal objective neurological symptoms, headaches only if severely disabling

No contradictions to dual antiplatelet therapy

Minor criteria (one required for qualification)

Intolerance to repeated lumbar puncture or lumbar drain

Diagnosis of dural sinus stenosis $\geq 50\%$ on CT or MR venography

Failed surgical shunting procedure or failed optic nerve fenestration

Pulsatility seen on manometry which is attenuated after stenosis

Patient preference

Table 2

Fig.1

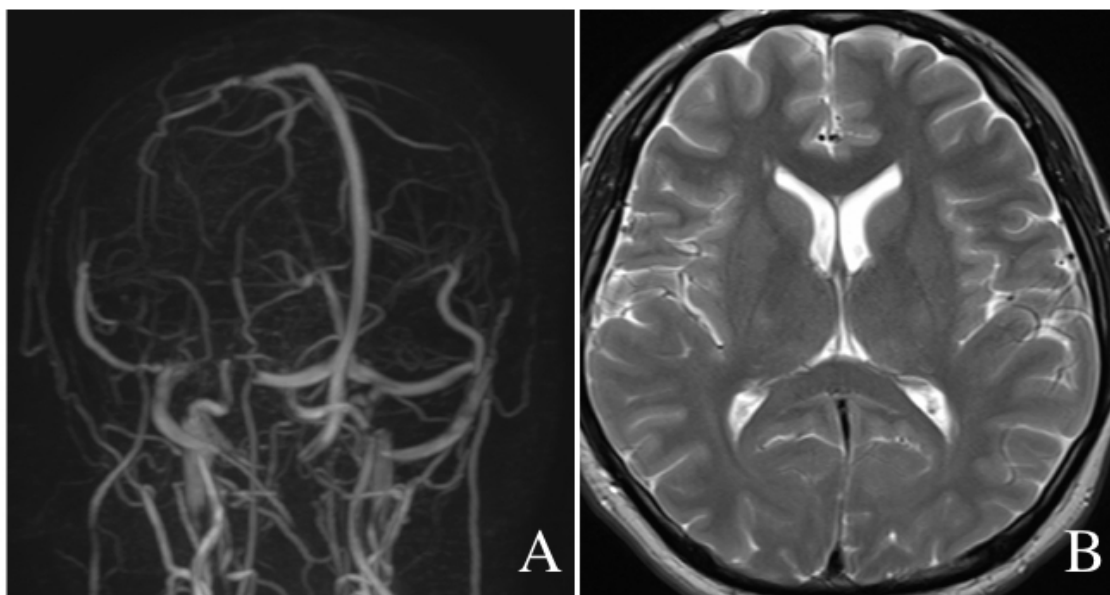


Fig.2

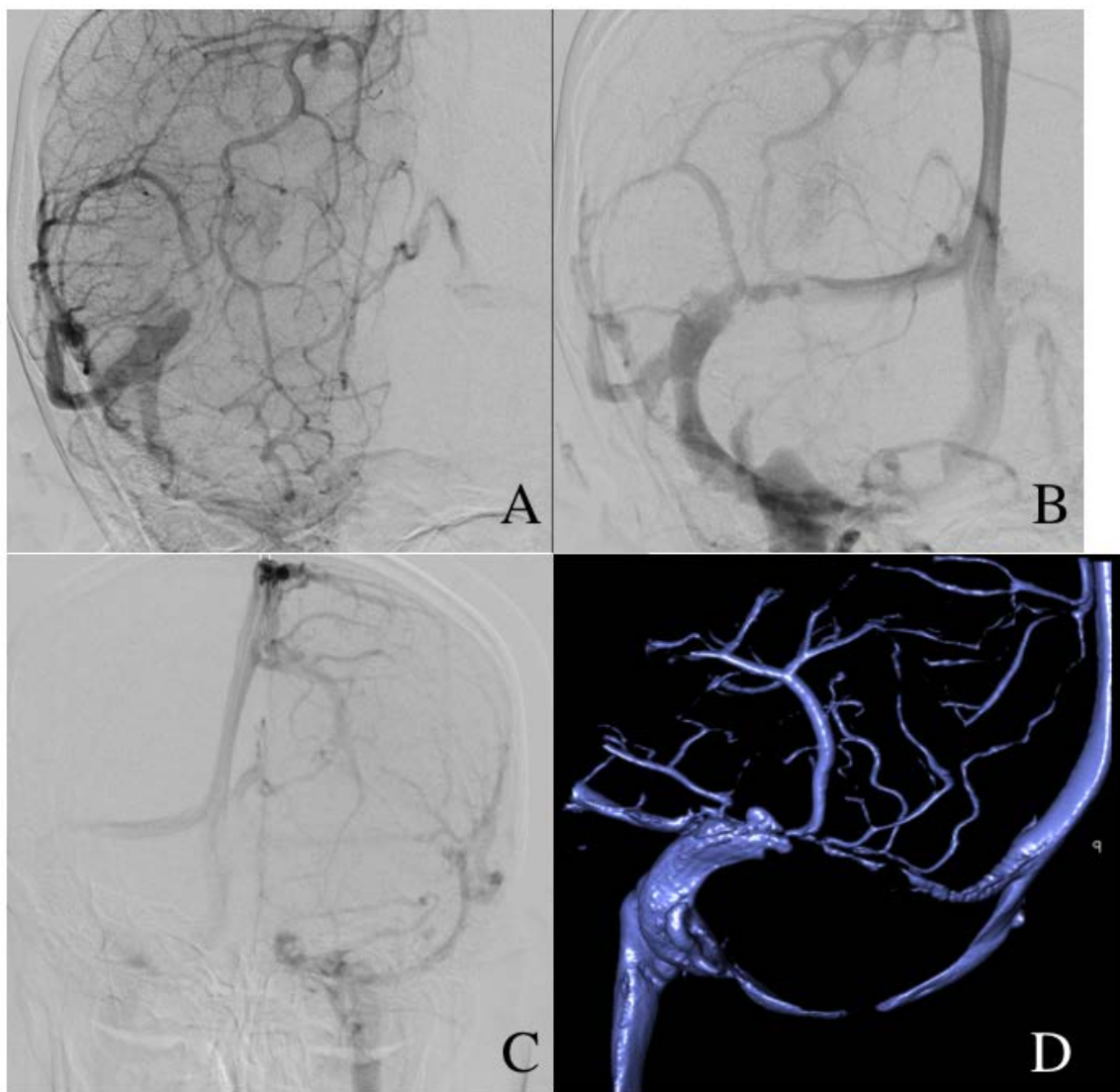


Fig.3

