

【論文掲載形式】

テクニカルノート

【論文タイトル】

Pressure cooker technique が有用であった頭皮動静脈瘻の 2 例

【著者名】

桑島淳氏¹、長久公彦²、樫村洋次郎¹、松崎丞¹、梅寄有砂¹、
河野健一¹、和田晃¹、山家弘雄¹、松本浩明¹、寺田友昭¹

【所属機関】

- 1.昭和大学藤が丘病院 脳神経外科
- 2.長久病院 脳神経外科

【連絡先】

連絡先著者：桑島淳氏

昭和大学藤が丘病院 脳神経外科

〒227-8501 神奈川県横浜市青葉区藤が丘 1-30

電話番号：045-971-1151 FAX：045-973-1019

E-mail：atuuji-kuwajima@s5.dion.ne.jp

【キーワード】

scalp arteriovenous fistula、pressure cooker technique Onyx、
NBCA

【宣言】

『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。』

和文要旨

【目的】頭皮動静脈瘻に対して pressure cooker technique (PCT) を用いて根治し得た 2 症例を経験したので報告する。

【症例】症例 1 は lt.posterior auricular artery(PAA) と lt.superficial temporal vein(STV)の間に direct AV shunt が形成され、そこに lt.occipital artery(OA)分枝からも feeder が流入する scalp AVF を認めていた。症例 2 は lt.OA、lt.PAA が feeder となり lt.occipital vein(OV)、lt.STV の間に direct AV shunt を形成する scalp AVF を認めていた。症例 1 は lt.PAA より、症例 2 は lt.OA より PCT を用いて、コイルと低濃度 NBCA で plug 形成し、非離脱式マイクロカテーテル (MC) から Onyx を圧入することで、シャント部を完全に閉塞させた。上記 MC は 2 例とも抜去できた。【結論】本法は、数分以内の注入で、マイクロカテーテルが接着した場合でも対処できる外頸動脈系のみ限定して使用すれば、有用な治療法となる可能性がある。

緒 言

頭皮動静脈瘻 (scalp arteriovenous fistula ; scalp AVF) は比較的稀な疾患であり、外頸動脈系に広範囲で複雑なネットワークを有し、耳鳴り、局所痛、頭痛、てんかん、出血、および頭皮壊死などの臨床症状を呈する。治療法は様々報告されており、開頭術、血管内治療、その併用療法を用いることが多いが、病変が広範囲に及ぶ場合は、切除後皮膚移植を行う必要がある。Pressure cooker technique (PCT) は Chapot らにより報告され、Onyx 注入用離脱式マイクロカテーテル近位置部に、別個に挿入されたマイクロカテーテルよりコイルと少量の NBCA を用いて逆流防止 Plug を形成し、その遠位部の離脱式マイクロカテーテルより Onyx を圧入することで病変部の塞栓率を高める technique である¹⁾。

今回我々は耳鳴りで発症した頭皮動静脈瘻に対して、PCT を非離脱式マイクロカテーテルに応用して Onyx を圧入することによりシャント部を完全に塞栓し根治し得た 2 症例を経験したので報告する。

症例提示

1. 症例 1

患者：75 歳、男性。

既往歴：白内障、副鼻腔炎、外傷歴なし。

現病歴：3 年前より左側の耳鳴りが出現。1 年前から徐々に症状が悪化していた。1 か月前からは睡眠障害が出現しブロチゾラム

を内服していた。近医で画像検査の結果、当科紹介受診となった。

入院時所見：神経学的異常所見は認めなかった。左側耳介後部に拍動性血管雑音を聴取した。

画像所見：脳血管撮影所見では lt.posterior auricular artery(PAA) と lt.superficial temporal vein(STV)の間に direct AV shunt が形成され、そこに lt.occipital artery(OA)分枝からも feeder が流入する scalp AVF と診断した (Fig.1A-H)。

血管内治療経過：全身麻酔下で手技を開始した。8Fr シースを右側大腿動脈に、6Fr シースを左側大腿静脈にそれぞれ留置した後に Heparin 5000 単位を静注し、全身ヘパリン化した。8Fr FUBUKI (朝日インテック, 愛知) を guiding catheter として左側外頸動脈起始部に留置し、intermediate catheter として 4.2Fr FUBUKI(朝日インテック, 愛知)を lt.PAA の起始部に留置した。一方、静脈側では lt.STV に 6Fr Optimo(東海メディカル, 愛知) を guiding catheter として lt.STV 起始部に留置し、intermediate catheter として 3.6FrJB2 カテーテル(ガデリウス・メディカル, 東京) をシャントポイント近傍に留置した。

まず、lt.PAA 側から Onyx 注入用の Marathon(eV3 Covidien,Irvine,CA,USA)をシャントポイントの最近位部まで挿入した。次に親カテーテルの 8Fr FUBUKI からコイル塞栓用に Excelsior SL-10 を挿入して、Marathon より約 1 cm 手前に留置した。lt.STV から Excelsior SL-10 (Stryker,Kalamazoo,MI,USA) を用いて、肺への Onyx の流出を避けるためシャント直後の静脈側に AXIUM7×30cm (eV3 Covidien,Irvine,CA,USA)を留置し、動

脈側の Excelsior SL-10 から AXIUM3mm×10cm(eV3 Covidien,Irvine,CA,USA)、ED coil 2mm×6cm (カネカメディックス,大阪)でコイル塞栓を行った(Fig. 2A)。次に Excelsior SL-10 から 25% n-butyl-2-cianoacrylate(NBCA)0.05ml を注入して plug を形成し Marathon 近位部を完全に閉塞させた(Fig. 2B)。動脈側の Excelsior SL-10 は抜去し、残った Marathon から Onyx 34 を 1.5ml 注入して、lt.PAA からシャントを越えて静脈側を閉塞するとともに、シャント部から流入動脈である lt.OA と lt.PAA の末梢へ Onyx を逆流させ(Fig. 2C-D)、完全に AV shunt を閉塞させた(Fig. 3A-D)。約 5 分程度の注入であったが、Marathon は抵抗無く抜去できた。両側総頸動脈撮影、椎骨動脈撮影でシャントポイントの完全消失を確認し手技終了とした。術後速やかに耳鳴りの消失を確認した。頭皮の発赤、壊死、脱毛などは認めなかった。

2. 症例 2

患者：63 歳、女性。

既往歴：特記事項なし、外傷歴なし。

現病歴：左側の拍動性耳鳴りで発症。

入院時所見：神経学的異常所見は認めなかった。左側後頭部に拍動性血管雑音を聴取した。

画像所見：脳血管撮影所見では lt.OA、lt.PAA が feeder となり lt.occipital vein(OV)、lt.STV の間に direct AV shunt を形成する scalp AVF と診断した (Fig. 4A-B)。

血管内治療経過：全身麻酔下で手技を開始した。8Fr シースを右側大腿動脈に留置した後に Heparin 5000 単位静脈投与して全身へパリン化した。8Fr FUBUKI を guiding catheter として左側外頸動脈起始部に留置し、intermediate catheter として 4.2Fr FUBUKI を lt.OA に留置した。lt.OA の mastoid branch から Marathon でシャントポイントにアプローチしようとしたが、手前の小さな屈曲が越えられなかった。その末梢側で内側下方に走る細い硬膜枝を認め、顔面神経への栄養血管との吻合の可能性があるので、Marathon をその血管に挿入し ED coil Extrasoft1.5mm×1cm で閉塞させた。次に親カテーテルである 8Fr FUBUKI よりコイル塞栓用に Excelsior SL-10 preshaped J を挿入して、Marathon より約 1 cm 手前に留置し、そこから GDC 10 soft 360 3mm×6cm(Stryker,Kalamazoo,MI,USA) 、 ED Extrasoft 2mm×6cm 挿入してコイル塞栓を行い(Fig. 4C)、更に Excelsior SL-10 preshaped J から 25%NBCA を 0.02ml 注入して plug を形成し、Marathon 近位部の lt.OA の mastoid branch 起始部を完全に閉塞させた(Fig. 5)。Excelsior SL-10 preshaped J は抜去し、残った Marathon から Onyx18、0.4ml を 2～3 分で注入し(Fig. 4D)、lt.OA 末梢側、lt.PAA へ Onyx を逆流させ完全に AV shunt を閉塞させた(Fig. 4E)。Marathon は抵抗無く抜去できた。全体造影でシャントポイントの消失を確認し手技終了とした(Fig. 4F)。術後速やかに耳鳴りの消失を確認した。頭皮の発赤、壊死、脱毛などは認めなかった。

考 察

頭皮動静脈瘻は 1757 年 Hunter によって最初に報告され、1829 年 Brodie によって円周結紮による治療法が報告されている²⁾。Cirroid aneurysms, arteriovenous aneurysms、aneurysm by anastomosis、aneurismal varix、plexiform angioma、scalp arteriovenous malformations などの様々な名称で呼ばれ³⁻⁴⁾、Grimes は動静脈間に少数で単純な交通枝のものを arteriovenous fistula、多数で複雑な交通枝を持ち varix 様のものを cirroid aneurysm、両者を合わせて scalp arteriovenous malformation (scalp AVM)とも定義している⁵⁾。

発生要因には先天性と後天性の 2 つに分類され、後天性要因は鈍的な外傷例が多いが、頭皮移植⁶⁻⁸⁾、開頭術後⁹⁻¹⁰⁾、顎関節症の関節鏡検査⁸⁾などでの発生が報告されている。治療の適応は、拍動性腫瘍の美容的軽減、出血の予防、頭痛や耳鳴り症状の悪化の場合が適応とされている。本症例 2 例では明らかな外傷歴や手術歴は聴取できなかったが、軽微な外傷が原因であった可能性は否定できない。治療法は、以前は根治的外科的切除が最も一般的な治療法であった。しかし、すべての栄養血管の処置は難しく、再発する傾向が高かった。また、不完全な治療により、頭皮の壊死や術後出血の合併症を来す可能性があった。Xue Bai らによる 2014 年までの過去 20 年の文献レビューでは、血管内治療は 29 例中、再発 3 例 (10.3%)、術部の圧痛、発赤、皮膚壊死、静脈への迷入、脱毛などの合併症が 4 例 (13.8%) で認められ、外科的治療では 65 例中、再発はなく、術中大量出血、皮膚壊死の合

併症が 2 例 (3.1%) で認められたとしている。また、血管内治療 + 外科的治療の併用の 5 例では再発や合併症は認めなかったと報告している¹⁵⁾。血管内治療は様々な治療法が報告されており、塞栓物質として、Onyx、NBCA、coil、polyvinyl acetate、エタノールなどが用いられ、circular compression device (CCD) を利用した直接穿刺法¹⁶⁾、経静脈的に balloon を利用した Onyx 注入による塞栓術¹⁷⁾などが報告されている。

本症例 2 例とも feeder は少なく、1 カ所のシャントポイントから細かな静脈を含む 2~3 本の drainer に流出しているという単純な血管構造を認めた。動脈側から、シャント部を完全に閉塞できる可能性が高いので、血管内治療を選択した。根治させるためには、1 本の流入動脈から液体塞栓物質で完全にシャント部と一部流出静脈側を閉塞させる必要があるため、確実性という観点から、塞栓物質として Onyx を選択した。但し、Onyx 注入部の皮膚が黒く変色、隆起した場合には摘出術が必要となること、Onyx は適応外使用であることなどを十分に informed consent した上で治療を行った。Onyx の塞栓方法としては、simple push technique、plug and push technique、balloon assist technique、pressure cooker technique (PCT) があるが、屈曲が強くバルーンカテーテルが挿入できないこと、強い圧で確実にシャントから静脈まで Onyx を到達させるために PCT を選択した。国内で使用できる Onyx 注入可能なジメチルスルホキシド (dimethyl sulfoxide ; DMSO) 対応カテーテルには Marathon、Echelon10、Echelon14、Headway17Advanced、Rebar18、Scepter C/XC があり、海外で

は Sonic、Apollo などの離脱式カテーテルが広く使用されている。本邦で使用でき、末梢到達性、操作性が良いカテーテルとして Marathon を選択した。また、用いた Marathon は離脱式ではないが、過去の経験から 20～25% 程度の NBCA の少量のカテーテル近位部への逆流であれば、外頸動脈系の血管内に数分留置しても抜去困難に至らなかったため PCT を使用した。また、万一抜去困難になった場合には小切開を加えれば OA 内のカテーテルを容易に切断できるので本法を用いることとした。

Onyx は注入時に血管痛を認めるため全身麻酔下で手術は施行した。Marathon の先端部をシャントポイントのできるだけ近位部に留置し、そこから約 10mm 離れた位置にコイル塞栓用の Excelsior SL-10 を留置する。Excelsior SL-10 より plug 形成のためにコイルを塞栓し、そこに同じ Excelsior SL-10 から NBCA25% を注入し plug を形成する。Plug 形成のポイントは Chapot の原法に従って、NBCA 注入用のマイクロカテーテルをコイルマス内ではなく、コイル直近に置き、NBCA でコイルマスが充填され、流入動脈にわずかに NBCA が逆流した時点で注入を中止している。その後 Marathon から持続的に Onyx を注入していくが (Fig.3)、PCT の plug and push technique に対する利点は safety margin を考えた逆流を考慮する必要はなく、短時間で大量の Onyx を圧入できる点である。ただ、圧入するため、血管撮影で描出されない逆行性の流入動脈にも Onyx が入ってゆくので、術前に流入動脈の情報を確実に把握しておく必要がある。症例 1 では静脈に迷入した Onyx が肺静脈に流れるのを防ぐために静脈

側にもコイルを留置し、症例 2 では顔面神経の栄養血管への Onyx の迷入を防ぐために plug 遠位の分枝にもコイル塞栓を追加している。

PCT の欠点としては、マイクロカテーテルを 2 本挿入し、コイル、NBCA、Onyx を使用するため手技が煩雑化すること、十分な plug 形成ができてない場合は逆流する可能性があること、Onyx 注入圧をかけ過ぎると血管が拡張し、plug と血管の隙間から Onyx が逆流する可能性があることなどが挙げられる。そのため、対象血管径の正確な測定と、コイル選択が必要である。また、Marathon は NBCA 塞栓、Onyx 塞栓で抜けなくなることがある。静かに時間をかけて引っ張ればほとんど抜去できるが、添付文書では Marathon は 20 cm 以上引っ張るとカテーテル離断のリスクが高くなる。これは Marathon の先端部 25 cm が柔らかく、構造上シャフト部のポリアミドから、先端部 25 cm がポリエーテルを加えて柔軟性を増したポリエーテルブロックアミドに変わるため、その接合部分から先端部が離断しやすいと考えられる。最悪、離断しても、離断部を外頸動脈に留置しておくか、局所麻酔下に切開し回収することが可能と考えられる。現在、当院では Marathon 離断の可能性も考慮し PCT は現在のところ外頸動脈系のみで試行している。また、Chapot らの報告では PCT において離脱式マイクロカテーテル近位部を NBCA 33～50% で塞栓しているが¹⁾、我々は、カテーテルが離脱式ではないため、当初から NBCA 25% でカテーテル近位部を塞栓し、今のところ数分の Onyx 注入では抜去困難症例は経験していない。PCT は今後 Sonic、Apollo など

の離脱式マイクロカテーテルの導入により、適応が広がり非常に有用な手技になると思われる。

結 語

Pressure cooker technique を非離脱式マイクロカテーテルに応用して閉塞し得た頭皮動静脈瘻の 2 例を報告した。この手法は distal access catheter (DAC) を用い、外頸動脈系の血管に限定し、コイルと低濃度の NBCA によるカテーテルのできるだけ先端部での小さな plug 形成下で、数分以内の Onyx 注入であれば安全に施行できた。今後、離脱式マイクロカテーテルの導入により有用な手技になっていくと考えられる。

利益相反の開示

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しません。

文 献

- 1) Chapot R, Stracke P, Velasco A, et al. The pressure cooker technique for the treatment of brain AVMs. J. Neuroradiol 2014; 41: 87-91
- 2) Schechter MM, Gutstein RA. Aneurysms and arteriovenous fistulas of the superficial temporal vessels. Radiology 1970; 97: 549-557
- 3) Muthukumar N, Rajagopal V, Manoharan AV, et al. Surgical management of cirroid aneurysms. Acta Neurochir (Wien)

2002; 144: 349-356

4) Fisher-Jeffes ND, Domingo Z, Madden M, et al. Arteriovenous malformations of the scalp. *Neurosurgery* 1995; 36: 656-660

5) Grimes OF, Freeman NE. Cirroid aneurysms of the scalp. *Ann Surg* 1949; 129:123-130

6) Bernstein J, Podnos S, Leavitt M. Arteriovenous fistula following hair transplantation. *Dermatol Surg* 2011; 37: 873-875

7) Champeaux C, Jecko V, Penchet G, et al. Scalp arteriovenous fistula following hair transplantation. *Clin Neuroradiol* 2014; 24: 285-288

8) Dabus G, Pizzolato R, Lin E, et al. Endovascular treatment for traumatic scalp arteriovenous fistulas : results with Onyx embolization. *J Neurointerv Surg* 2014; 6: 405-408

9) Amlashi SF, Riffaud L, Morandi X. Arteriovenous fistula of the superficial temporal artery : an exceptional complication of the pterional approach. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2004; 75:1077-1078

10) Morioka T, Nishio S, Hikita T. Traumatic arteriovenous fistulae of the scalp at the area of previous craniotomy. *Surg Neurol* 1988; 30: 406-407

11) Xue B, Yi L, Chao Y. Surgical Resection of a Complex Multiple Scalp Avf without Preoperative Embolization: A Case

Report. Turk Neurosurg 2015; 25: 638-642

12)Youn SW, Lee NJ, Suh SI, et al. Direct-puncture embolization of scalp arteriovenous fistulae. Neurol Med Chir (Tokyo) 2012; 52: 525-528.

13)Dalyai RT, Schirmer CM, Malek AM. Transvenous balloon-protected embolization of a scalp arteriovenous fistula using Onyx liquid embolic. Acta Neurochir 2011; 153: 1285-1290

Figure Legends

Fig.1 Preoperative left external carotid angiogram in Case1.

A-D: Antero-posterior view of the external carotid artery from early to late arterial phase.

E-H: Lateral view of the external carotid artery from the early to late arterial phase.

Arrows show the shunt point.

Fig.2 Selective angiography of the left posterior auricular artery in Case 1.

A: Lateral view. The black arrow shows the tip of Marathon navigated in the posterior auricular artery as close to the shunt point. Black arrow heads show the 7mm × 30 cm Axium coil placed in the draining vein adjacent to the shunt to prevent from the migration of the Onyx into the pulmonary artery. The white arrow head shows the coils (Axium 3 mm × 10 cm and ED coil 2 mm × 6 cm) placed at the just proximal portion of the tip of the Marathon to make the plug by injecting 25% NBCA from the SL-10 located at the proximal portion of the coils.

B: Lateral view after injection of 25% NBCA from SL-10. The white arrow shows the injected NBCA.

C: Lateral view. Injection of Onyx 34 from Marathon. Onyx passed through the shunt point and entered into the distal part of PAA (black arrow).

D: Lateral view at the late phase of Onyx injection. Onyx entered into the OA through the shunt point and occluded the distal part of the OA contributing the shunt (black arrow).

Fig.3 Postoperative external carotid angiogram in Case 1.

A, B: Antero-posterior view of the external carotid angiogram at early and late arterial phase. The arterio-venous shunt was completely disappeared.

C, D: Lateral view of the external carotid angiogram at early and late arterial phase. The arterio-venous shunt was completely disappeared.

Fig.4 Lateral view of the left external carotid angiogram in Case2.

A: Preoperative external carotid angiogram, early artery phase. The arrow shows the shunt point.

B: Preoperative external carotid angiogram, capillary phase. The arrow shows the shunt point.

C: Selective angiogram from the SL-10 placed 1cm proximal of the tip of the Marathon in the occipital artery. Arrow shows coils (GDC 10 soft 360 3 mm × 6 cm, ED Extrasoft 2 mm × 6 cm) placed at just proximal of the Marathon.

D: Injection of Onyx from the Marathon. Arrow shows the coil introduced into the meningeal branch of the mastoid branch of the occipital artery to prevent Onyx migration into the branches supplying cranial nerves. Arrow heads show 25% NBCA injected from the SL-10 to make the plug. Onyx penetrated through the shunt and occluded the distal branch of the OA and venous side.

E, F: Postoperative external and common carotid angiogram. The arterio-venous shunt was completely obliterated.

Fig. 5 Schematic diagram of the scalp AVF in Case2.

Fig.1

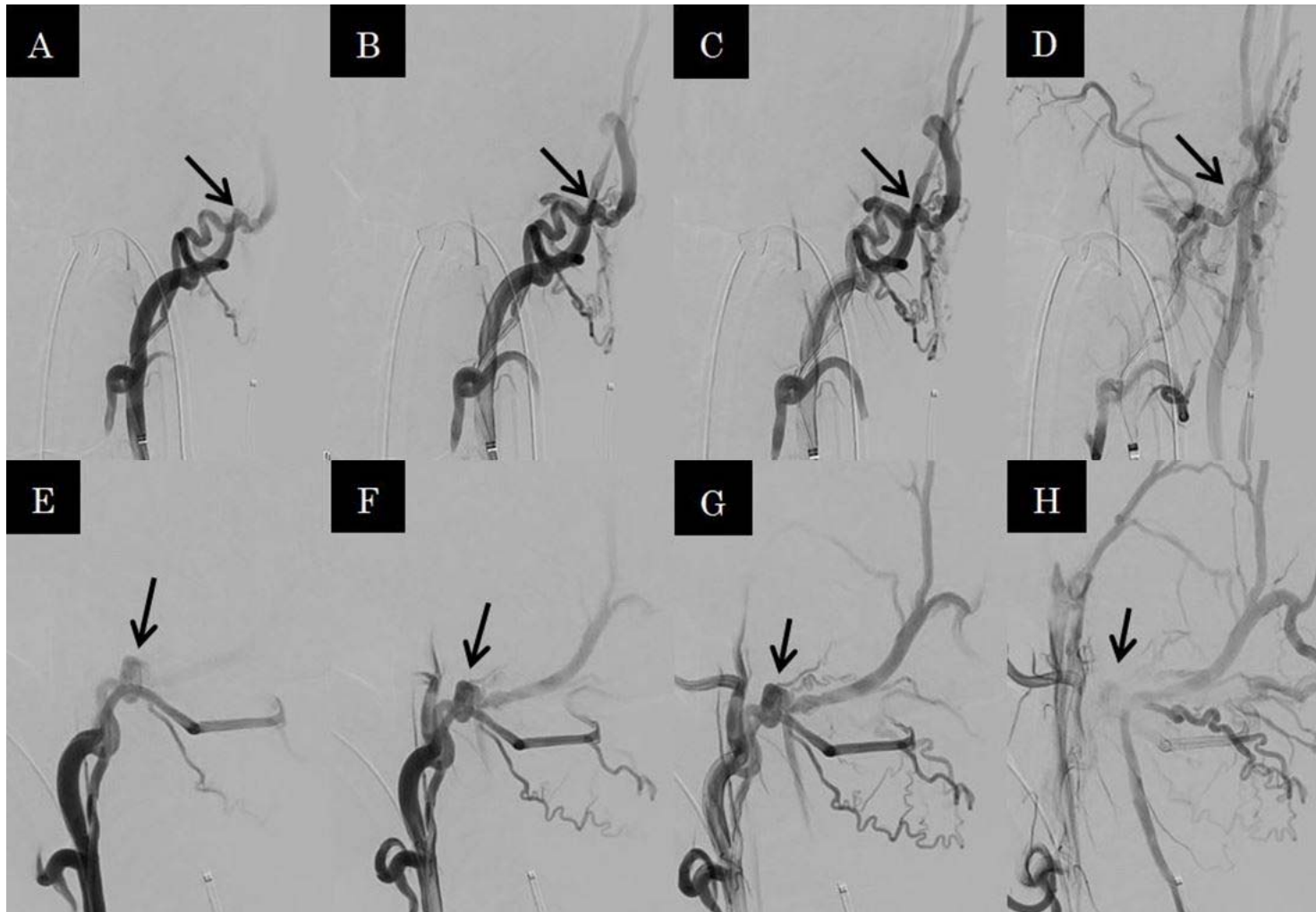


Fig.2

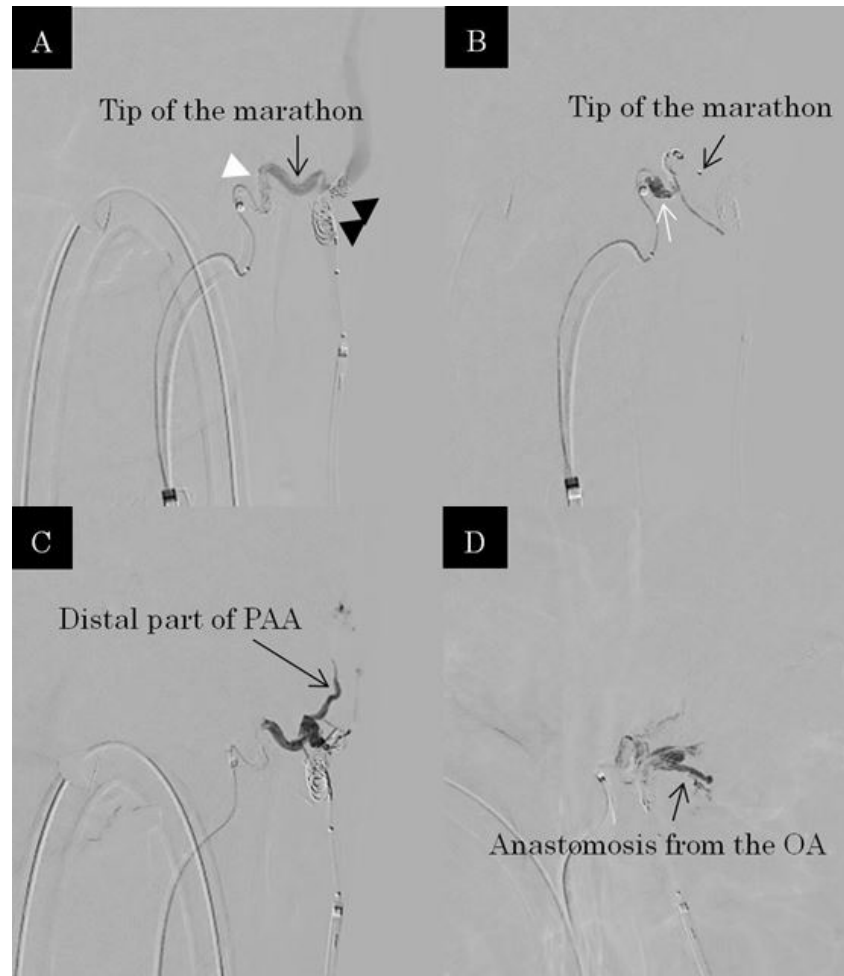


Fig.3

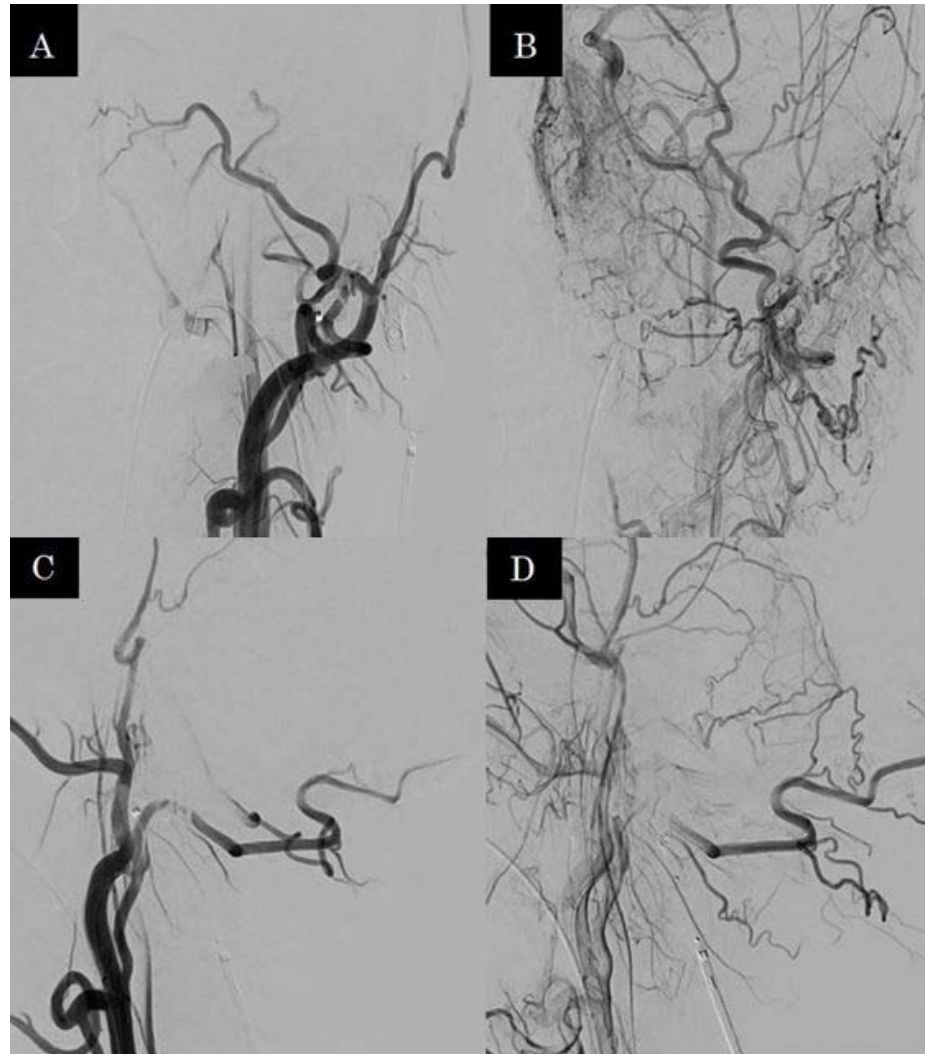


Fig.4

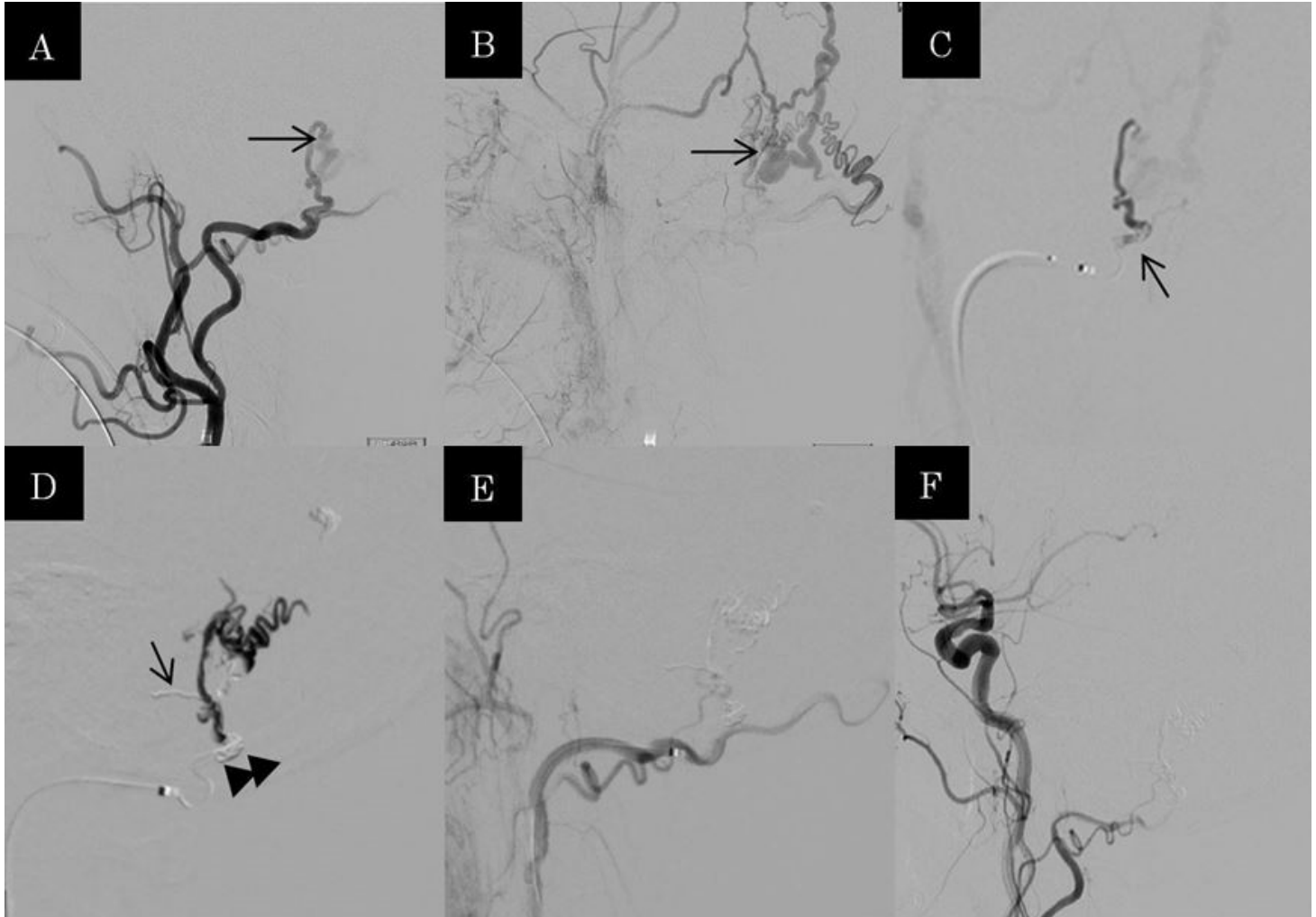


Fig.5

