

論文形式：症例報告

題名：

Braded-stent 支援下塞栓術で母血管温存した外傷性頭蓋外
椎骨動静脈瘻の一例

著者：

下永皓司¹⁾，松重俊憲¹⁾，細貝昌弘¹⁾，川住知弘¹⁾，
栗栖薫²⁾，坂本繁幸²⁾

所属：

1) 地方独立行政法人 広島市立病院機構 広島市立安佐市
民病院

脳神経外科・脳血管内治療科

2) 広島大学大学院医歯薬保健学研究科 脳神経外科学

連絡先

下永 皓司

広島市立安佐市民病院 脳神経外科

〒731-0293 広島市安佐北区可部南2丁目1番1号

TEL：082-815-5211（代） FAX：082-815-4668

E-mail：koji-shimoshimo@hotmail.co.jp

Key words：

Vertebral arteriovenous fistula, Endovascular therapy,
Stent assisted

Title: A case of traumatic vertebral arteriovenous fistula
treated by stent assisted coil embolization with
preservation of parental artery

Authors:

Koji SHIMONAGA, Toshinori MATSUSHIGE,
Masahiro HOSOGAI, Tomohiro KAWASUMI,
Kaoru KURISU, Shigeyuki SAKAMOTO

Institutions:

- 1) Department of Neurosurgery AND Interventional
neuroradiology, Hiroshima City Asa Citizens Hospital
- 2) Department of Neurosurgery, Hiroshima University
Graduate School of Biomedical and Health Sciences

本論文を，日本脳神経血管内治療学会機関誌「Journal of
Neuroendovascular Therapy（脳神経血管内治療）」に投稿す
るにあたり，筆頭演者，共著者によって，国内外の他の雑誌
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】椎骨動静脈瘻は多くが外傷性で、近年は血管内治療で瘻孔および母血管閉塞する手技が標準的治療として行われている。この度 stent 支援下に椎骨動脈を温存させ、消失した症例を経験したので報告する。

【症例】48歳男性。頭部打撲受傷5日後より拍動性耳鳴を訴え、精査にて頭蓋内へ逆流する左頭蓋外椎骨動静脈瘻を認めた。動静脈瘻は venous pouch が椎骨動脈を取り巻くように拡張していた。Stent 支援下で静脈側から瘻孔をコイル塞栓し、血流は低下した。術後3ヶ月で動静脈瘻は消失しているのを確認した。

【結語】

外傷性椎骨動静脈瘻を stent 支援下で塞栓を行い、治療した一例を経験した。母血管を温存する方法として stent 支援下での治療は有効と考えられた。

緒言

椎骨動静脈瘻は外傷性と特発性に分類され、外傷に起因することが多い¹⁾。一般的に血管雑音、耳鳴り、めまいや神経根症状で発症することが多いが、稀に大出血や拍動性血腫の原因となることが報告されている^{1,2)}。椎骨動静脈瘻の治療は、以前は外科的な治療が行われてきたが危険性が高い反面、治療効果が低く、近年では血管内治療が第一選択となっている¹⁻³⁾。一方で、血管内治療の手段には確立された手技手法はな

く、母血管ごと閉塞する報告例が多い^{1,4-9)}。しかしながら、対側椎骨動脈の発達程度や側副血行路の有無、長期的な観点から、母血管閉塞が困難な場合や順行性血流を温存したい症例が存在する。

今回我々は母血管に **stent** を留置して内腔を確保した上で、経動脈的に瘻孔から静脈側を塞栓し、3 ヶ月後に消失した症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症例提示

症例

患者：48 歳、男性

主訴：拍動性耳鳴

既往歴：赤血球増多症

家族歴：特記事項なし

1. 現病歴：歩行中にバイクと接触して後頭部を中心に受傷。

左小脳テントにわずかな急性硬膜下血腫があり(Fig. 1A)、保存的加療を行なったが、受傷 5 日後より拍動性耳鳴が出現した。MRA で **inferior petrosal sinus (IPS)** から **cavernous sinus (CS)** の描出があり(Fig. 1B)、動静脈瘻疑いで当院紹介となった。

入院時現症：意識清明。神経脱落症状はなく、頭痛と拍動性耳鳴のみであった。頭部 CT では既知の左小脳テントの急性硬膜下血腫を認めた。血管撮影検査では左椎骨動脈（第 4 頸椎レベル）に **high-flow** の **AV shunt** を認め、IPS から CS に

逆流を認めた(Fig. 2A,B,C,D)。MRA TOFで椎骨動脈周囲に取り囲むように、著明に拡張した vertebral plexus を認めた。椎骨動脈後方内側から約 3.5mm の瘻孔より vertebral plexus へ交通し、single fistula と考えられた。対側 vertebral artery (VA) の発達は良好で、病変部近位で閉塞試験を行ったところ、虚血耐性があり、母血管閉塞は可能と考えられた。症候性で頭蓋内に逆流を認めたため、血管内治療による動静脈瘻閉塞を企図した。若年症例であり、まずは母血管温存することを優先すべく、stent 留置を考慮し術1週間前よりアスピリン 100mg とクロピドグレル 75mg を投薬した。

脳血管内治療：局所麻酔下に右大腿動脈に 9Fr 25cm sheath (ゼメックスイントロデューサー)を、flow reversal 法の下で行うべく左大腿静脈に 4Fr 11cm sheath (ゼメックスイントロデューサー)を留置した。全身へパリン化を行い、activated clotting time を 250 秒前後に延長させた。9Fr OPTIMO(東海メディカルプロダクツ，愛知)を左鎖骨下動脈に誘導した。順行性及び flow reversal 下で血管撮影したが、瘻孔は大きく、venous pouch も VA を全周性に取り巻くように存在しており、椎骨動脈と瘻孔、静脈瘤を分離する至適 Working angle は得られなかった。TACTICS (テクノクラートコーポレーション，愛知)と Headway21 (テルモ，東京)の組み合わせで、瘻孔部を越えたと思われる VA 末梢に誘導して撮影を行ない、動静脈瘻への血流の存在がなく、single

fistula であることを確認した。先端を 60 度弯曲させた Excelsior SL10 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) を、左椎骨動脈から瘻孔を越えて、椎骨静脈叢内で一周させ留置した。もう 1 本は 30 度弯曲させ、近位側の静脈瘤内に留置した (Fig. 3A)。続いて LVIS (MicroVention-Termo, Tustin, CA, USA) 4.5mm*32mm を第 3 頸椎下位より展開を開始しシャントポイントである第 4 頸椎レベルでステントセルが密になるように半展開した。Excelsior SL10 から coil を留置し VA に coil が逸脱していないことを確認して stent を完全展開した (Fig. 3B)。以後は椎骨静脈叢内を合計 18 本の coil を使用し tight packing した (Fig. 3C,D)。頭蓋内への逆流と耳鳴は消失したが、動静脈瘻は残存していたために、1 枚目の LVIS 留置後、true lumen を確保していた Headway21 より 2 枚目の LVIS 4.5mm*32mm を展開した。この時点で動静脈瘻の血流は著減し (Fig. 4A,B)、順行性血流が改善しており、stent の整流効果による閉塞を期待して手術を終了した。

1. 術後経過：術後臨床症状は消失し、術翌日の MRI では脳梗塞は認めず、CS の描出は消失した。治療 1 ヶ月後の 4DCTA で異常血管の描出はなく、さらに治療 3 ヶ月後に血管撮影を行い (Fig. 5A,B)、動静脈瘻が消失していることを確認し、抗血小板剤をクロピドグレルのみとした。

考察

椎骨動静脈瘻は頭蓋外椎骨動脈もしくはその分枝と静脈叢

間で形成される¹⁾。発症原因は医原性を含む頸部への外傷性と、特発性によるものが大半である。Herrera ら⁴⁾は 18 例のまとまった外傷性椎骨動静脈瘻の報告によると、発症形式は、半数が頸部雑音で発症し、くも膜下出血、脳梗塞発症が 1 例ずつ認められていた。動静脈瘻の症状には周囲構造物の盗血現象や、静脈高血圧による影響から、シャント内の血流量や流出路のパターンに起因しているとされている。血管内治療の治療戦略は 18 例中 12 例で occlusion test を先行し、母血管閉塞を行っていた。母血管閉塞中、全例で虚血合併症を認めていない。88.9%で術後即時閉塞を達成し、血管内治療が安全かつ有効な治療であると報告している。— 椎骨動静脈瘻は比較的稀な疾患であり、上述の他では報告例の多くが症例報告である。2000 年以降の椎骨動静脈瘻は渉猟しえた症例は本例を含め 53 例であった (Table1)^{4・14)}。その結果、患者背景として性差は認めず (男性 30 例、56%)、発症平均年齢は 28 歳 (11~76 歳) と比較的若年であった。その理由の一つとして、医原性を含む外傷性が大半であると考えられた。

血管内治療の治療戦略は、瘻孔から静脈側の塞栓を治療ゴールとして、報告例ごとに種々のデバイス : detachable balloon、coil、stent、glue を用いており、それぞれを組み合わせた症例も散見した。椎骨動脈は 40% (21 例) において温存、60% (32 例) で閉塞していた。全例で手術における合併症の報告はなく、転帰は 91% (48 例) で完全閉塞が得られた。

完全閉塞に至らなかった例 5 例（9%）の治療内容は stent 使用が 2 例、detachable balloon を用いた治療が 1 例、coil のみによる閉塞が 2 例で、治療戦略として母血管温存が 2 例、母血管閉塞を企図したものが 3 例であり、治療手段や母血管の温存の有無と部分閉塞の関連はなかった。閉塞血管は頭蓋外椎骨動脈であり、側副血行路は豊富であることが予想されるが、急性期、慢性期における虚血のリスクは懸念される。Higashide³⁾らは、母血管閉塞した 16 例中 1 例（6%）で脳梗塞を発症したと報告している。椎骨動静脈瘻が比較的若年の疾患であることから、長期的に動脈硬化性変化による虚血リスクを考慮すると、安易に閉塞するのではなく、母血管温存を念頭に治療戦略を練るべきであると考えられた。

最近の報告例を検証すると、stent の開発および技術の向上により、種々の病態に対して stent を用いた治療戦略で、母血管を温存する傾向にある。8 例に stent が使用され、6 例で母血管温存かつ瘻孔の閉塞に成功している。使用された stent は Solitaire AB の 1 例以外は covered stent であった。Yeh⁶⁾らは 3 例に covered stent を使用し 1 例で再発をきたしている。その原因の一つとして、病変が屈曲の強い V3 portion であり、頸部の伸展、屈曲位における stent の kink、migration による瘻孔への閉鎖不十分をきたしたと考察し、stent 使用時は病変が直線的である V1～V2 portion を推奨している。

LVIS stent は本邦で使用可能な頭蓋内 stent の中では braded-stent に分類される。金属被覆率は約 23%と同種の

braded-stent である Pipeline(Covidien/ev3 Neurovascular, Irvine, CA, USA)の 30-35%よりは低いものの、laser-cut stent である Enterprise(Cordis Neurovascular, Miami, Florida, USA)の 8%¹⁵⁾よりは高いとされている。頸部での使用は適応外であるため、慎重を期すことが必要ではあるが、現行で使用可能な stent としては非常に高い金属被覆率を有する。Wang ら¹⁵⁾は、computational fluid dynamics (CFD) を使用し、それぞれの stent 留置に伴う血行力学的変化を定量化したところ、LVIS stent を 2 枚用いた場合、wall shear stress reduction 63%、velocity reduction 46%と Pipeline 1 枚の 51%、37%に比べ優っているという報告をした。さらに LVIS stent は、展開時に cell を意図的に高密度にすることが可能である。

本例は頭部外傷に起因した頭蓋外椎骨動静脈瘻に対して、若年であり、single fistula、病変部が前述したように V2 portion で stent 留置が比較的容易であることから、high flow 病変であったがまずは母血管温存を優先事項とし、2 期的な母血管閉塞も選択肢として手術に臨んだ。ダブルカテーテルで静脈側を可及的に塞栓して血流が減じた上に、2 枚の LVIS stent を留置し、術直後は動静脈瘻への血流は著しく減弱し症状改善した。術当日は血管撮影上完全閉塞は得られなかったが、術 1 ヶ月後の 4D CTA で消失し得た。LVIS stent を複数枚留置することは、母血管の温存と整流化を期待できる可能性があり、治療選択の一つになると考えられた。

結 論

外傷性椎骨動静脈瘻に対して、stent を利用することで、母血管温存し、根治した 1 例を経験した。

Braded-stent である LVIS stent の複数本の使用は整流効果が期待でき、母血管を温存する手段の一つとして有効であると考えられた。

本論文に関して、開示すべき利益相反は存在しない。

References:

1. Beaujeux RL, Reizine DC, Merland JJ, et al. Endovascular treatment of vertebral arteriovenous fistula. *Radiology* 1992;183:361-367.
2. Vinchon M, Laurian C, Cormier JM, et al. Vertebral arteriovenous fistulas: a study of 49 cases and review of the literature. *Cardiovasc Surg* 1994;2:359-369.
3. Higashida RT, Halbach VV, Hieshima GB, et al. Interventional neurovascular treatment of traumatic carotid and vertebral artery lesions: results in 234 cases. *AJR Am J Roentgenol* 1989;153:577-582.
4. Herrera DA, Vargas SA, Dublin AB. Endovascular treatment of traumatic injuries of the vertebral artery. *AJNR Am J Neuroradiol* 2008;29:1585-1589.
5. Briganti F, Tedeschi E, Caranci F, et al. Endovascular treatment of vertebra-vertebral arteriovenous fistula. A report of three cases and literature review. *Neuroradiol J* 2013;26:339-346.
6. Yeh CH, Chen YL, Wong HF, et al. Anatomically based approach for endovascular treatment of vertebro-vertebral arteriovenous fistula. *Interv Neuroradiol* 2014;6:766-773.
7. Nishihiro S, Sugiu K, Date I, et al. A case of trau

- matic vertebral arteriovenous fistula treated by internal trapping of the vertebral artery. *No Shinkei Geka* 2016;44:135-141.
8. Takegami T, Imai K, Ikeda E, et al. Endovascular trapping using a tandem balloon technique for a spontaneous vertebravertebral fistula associated with Neurofibromatosis Type 1. *No Shinkei Geka* 2012;40:705-709.
9. Ichimasu N, Hashimoto T, Kohno M, et al. Endovascular treatment for spontaneous vertebral arteriovenous fistula: A report of 2 cases. *Surg Cereb Stroke* 2017;45:59-63.
10. Buyukkaya R, Hakyemez B, Erdogan C. Retrievable stent technique and coil embolization of high-flow iatrogenic cervical vertebral arteriovenous fistula: technical note. *Vasc Endovascular Surg* 2013;47:648-651.
11. Tokunaga S, Sambongi Y, Tsumoto T, et al. High-resolution cone-beam computed tomography localization of an iatrogenic vertebral arteriovenous fistula for trans-arterial target embolization. *JNET* 2017;11:81-87.
12. Nii K, Kazekawa K, Tanaka A, et al. Clinical efficacy of blood flow interruption using the hyperform in right

- vertebral arteriovenous fistula – case report. *Brain Nerve* 2007;59:887-890.
13. Hiu T, Yoshida T, Nagata I, et al. Vertebral arteriovenous fistula presenting with subarachnoid hemorrhage: A case report. *No Shinkei Geka* 2009;37:667-671.
14. Ito O, Nishimura A, Hitotsumatsu T, et al. Spontaneous vertebral arteriovenous fistula manifesting as radiculopathy. *No Shinkei Geka* 2011;39:775-781.
15. Wang C, Tian Z, Yang X, et al. Flow diverter effect of LVIS stent on cerebral aneurysm hemodynamics: a comparison with Enterprise stents and the Pipeline device. *J Transl Med* 2016;14:199-582.

Figure legends

Fig.1

A. CT shows subdural hematoma around the left cerebellar tentorium.

B. MRA shows abnormal image and around the cavernous sinus and the inferior petrosal sinus on the left side.

Fig.2

A. C. Left vertebral angiogram shows high-flow arteriovenous fistula (small arrow) with varix at the C4 level. The fistula drains into the inferior petrosal sinus. Asterisk shows fistula. anteroposterior view (A), lateral view (C),

B. D. Schematic representation shows complex drainage into vertebral plexus (big arrow) around vertebral artery (arrowhead). anteroposterior view (B), lateral view (D),

Fig.3

A. Schematic figure shows one microcatheter passes through the varix via fistula (arrowhead), the other one passes posterior side of vertebral plexus.

B. The stent cell was expanded to be dense at the fistula.

C. D. Fluoroscopy shows coiling by the microcatheter in the varix (C), vertebral plexus (D).

Fig.3

- A. Postoperative fluoroscopy shows the coils mass in the venous pouch and LVIS stent at the vertebral artery.
- B. Postoperative left vertebral angiography shows slow-flow arteriovenous fistula.

Fig.4

- A. B. Left vertebral angiogram 3 months after endovascular treatment shows complete occlusion of arteriovenous fistula. anteroposterior view (A), lateral view (B),

Table 1

Summary of reported cases of VA fistula.

M: male, F: female, CO: complete obliteration, PO: partial obliteration, DB: detachable balloon

*: mean age (range) of 18 patients

n: number of reported patients

Table 1. Summary of reported cases of VA fistula

Author (published year)	n	sex	age	cause	treatment	parent VA	outcome
Gonzalez A, et al. (2001)	1	F	57	iatrogenic	Stent	Patent	CO
Taylor G, et al. (2001)	2	F	41	Traumatic	Coils	Sacrificed	CO
		F	44	iatrogenic	DB	Sacrificed	CO
Kai Y, et al. (2001)	2	F	32	iatrogenic	Coils	Patent	CO
		F	66	iatrogenic	Coils	Patent	CO
Reddy M, et al. (2002)	1	F	22	Traumatic	Coils→Surgery	Sacrificed	PO
Kahara V, et al. (2002)	1	M	38	Spontaneous	Coils	Sacrificed	CO
Sadato A, et al. (2003)	1	F	24	Spontaneous	Stent	Patent	CO
Siddhartha W, et al. (2003)	1	F	36	Spontaneous	Coils+DB	Sacrificed	CO
Hauck EF, et al. (2006)	1	F	51	Spontaneous	Coils	Sacrificed	PO
De Keukeleire K, et al. (2006)	1	F	13	Spontaneous	Coils	Sacrificed	CO
Nii K, et al. (2007)	1	M	44	Spontaneous	Coils	Patent	CO
Shirakawa W, et al. (2008)	1	M	58	Traumatic	Coils	Sacrificed	CO
Herrera D.A, et al. (2008)	18	M:14	28 (11-49)*	Traumatic(17) iatrogenic(1)	DB(15)Coils(2)Stent+glue(1)	Sacrificed(13)Patent(5)	CO(17)PO(1)
Paolini S, et al. (2008)	1	M	26	Spontaneous	DB→Surgery	Sacrificed	PO
Hui K, et al. (2009)	1	M	60	Spontaneous	Coils	Patent	CO
Wang Q, et al. (2010)	1	F	20	Spontaneous	Coils+glue	Sacrificed	CO
Modi M, et al. (2010)	1	M	24	Spontaneous	DB	Patent	CO
Ito O, et al. (2011)	1	M	61	Spontaneous	Coils	Patent	CO
Takegami T, et al. (2012)	1	M	28	Spontaneous	Coils	Sacrificed	CO
Gao P, et al. (2013)	2	F	24	Spontaneous	Coils+glue	Sacrificed	CO
		F	46	Spontaneous	Coils+glue	Sacrificed	CO
		M	61	Traumatic	DB	Patent	CO
Briganti F, et al. (2013)	3	F	56	Spontaneous	Coils	Patent	CO
		F	34	Spontaneous	DB+coils	Sacrificed	CO
Buyukkaya R, et al. (2013)	1	M	16	iatrogenic	Coils+stent	Patent	CO
		M	45	Traumatic	Coils	Sacrificed	CO
		M	52	Traumatic	Stent→Coils+glue	Sacrificed	PO
Yeh C,et al. (2014)	5	F	52	Spontaneous	Stent	Patent	CO
		M	42	Spontaneous	Coils+glue	Sacrificed	CO
		F	43	Traumatic	Stent	Patent	CO
Nishihiro S, et al. (2016)	1	M	66	Traumatic	Coils	Sacrificed	CO
Tokunaga S et al. (2017)	1	F	76	iatrogenic	Coils	Patent	CO
Ichimasu N, et al. (2017)	2	M	31	Spontaneous	Coils	Sacrificed	CO
		F	41	Spontaneous	Coils	Patent	CO
present case	1	M	48	Traumatic	Coils+stent	Patent	CO

n: number of reported patients

*: mean age (range) of 18 patients

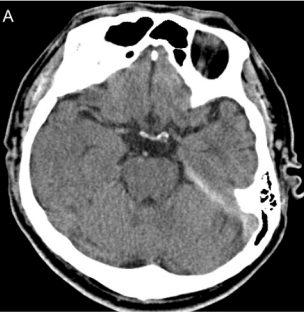
VA: vertebral artery

DB: detachable balloon

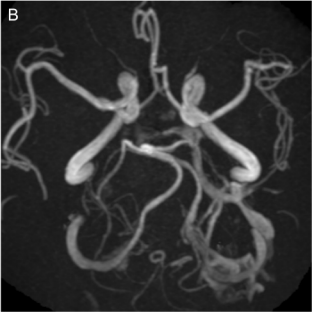
PO: Partial obliteration

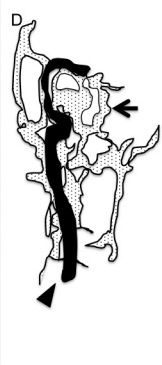
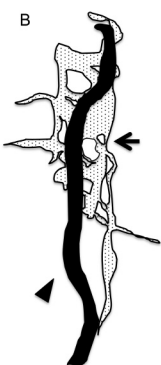
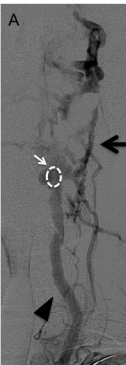
CO: Complete obliteration

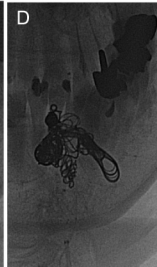
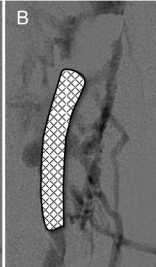
A



B









A



B

