

【論文種別】

症例報告

【タイトル】

Inferior petroclival vein にシャントポイントを有する硬膜動静脈瘻の1例

A case of dural arteriovenous fistula involving the inferior petroclival vein

【著者】

林直樹¹⁾²⁾、川西正彦²⁾、大久保修一¹⁾、苧坂直博¹⁾、苧坂邦彦¹⁾
田宮隆²⁾

Naoki HAYASHI¹⁾²⁾, Masahiko KAWANISHI²⁾, Shuichi OKUBO¹⁾,
Naohiro OSAKA¹⁾, Kunihiro OSAKA¹⁾, Takashi TAMIYA²⁾

【所属】

- 1.おさか脳神経外科病院 脳神経外科
- 2.香川大学医学部 脳神経外科

1.Department of Neurosurgery, Osaka Neurosurgical Hospital,
Kagawa, Japan

2.Department of Neurological Surgery, Kagawa University

Faculty of Medicine, Kagawa, Japan

【連絡著者】

林 直樹 Naoki HAYASHI

所属：おさか脳神経外科病院 脳神経外科

Department of Neurosurgery, Osaka Neurosurgical Hospital,
Kagawa, Japan

住所：〒761-8083 香川県高松市三名町 378-1

電話番号：087-886-3300 Fax：087-885-3038

メール：nhayashi@osaka-nhp.jp

Address: 378-1 sanmyou-cho, Takamatsu, Kagawa 761-8083, Japan

Tel: +81-87-886-3300 Fax: +81-87-885-3038

E-mail: nhayashi@osaka-nhp.jp

【Key words】

dural arteriovenous fistula, inferior petroclival vein, transvenous
coil embolization, inferior petrosal sinus

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いたします。

< 和文要旨 >

【目的】 Inferior petroclival vein(IPCV)にシャントを有する硬膜動静脈瘻を経験したので報告する。

【症例】 77歳女性。右眼痛、拍動性耳鳴、眼瞼浮腫、結膜充血、さらに右眼瞼下垂、複視の右動眼神経麻痺が出現し、精査にて IPCV にシャントする硬膜動静脈瘻と診断。主な流出路である下錐体静脈洞の近位側が閉塞しており、逆行性に海綿静脈洞に流出し、眼症状を呈していた。これに対し経静脈的コイル塞栓術にて根治し得た。

【結論】 IPCV にシャントする非常に稀な硬膜動静脈瘻の治療を経験した。シャント部位や静脈走行の正確な同定のため、3D-DSA など症例ごとの3次元的な血管解剖の理解が重要である。

<英文要旨>

[Objective] We report a very rare case of dural arteriovenous fistula (DAVF) involving the inferior petroclival vein (IPCV).

[Case Presentations] The patient was a 77-year-old woman. She suffered from right ophthalmalgia, pulsating tinnitus, blepharedema and chemosis, as well as right ptosis and diplopia (right oculomotor nerve palsy). Our imaging examinations demonstrated DAVF involving the IPCV. Since the proximal side of the right inferior petrosal sinus (IPS) was obstructed, the main venous drainage flow refluxed retrogradely from the IPS to the cavernous sinus (CS). Therefore, her clinical symptoms were similar to those of CS-DAVF. We successfully performed transvenous coil embolization (TVE) in the IPCV and IPS.

[Conclusion] We experienced a very rare case of DAVF involving the IPCV. We believe that it is important in each case to understand the three-dimensional vascular anatomy by making full use of 3D-DSA and other modalities in order to accurately identify the shunting point and venous drainage structure.

< 本文 >

【緒言】

Cavernous sinus(CS)から anterior condylar confluence(ACC)に流入する静脈の中に、petroclival fissure(PCF)下面(頭蓋外)を走行する inferior petroclival vein (IPCV)がある。PCF 上面(頭蓋内)を走行する inferior petrosal sinus (IPS)とは鏡面的な位置に存在し、両者には交通もあるとされている^{1,2)}。

今回我々はシャントポイントが IPCV に存在する非常に稀な dural arteriovenous fistula(DAVF)を経験した。シャント血流が IPS 及び ACC に流出し、IPS 近位部が閉塞していたことにより、CS に逆流し、あたかも CS の DAVF のような眼症状を中心に呈していた。これに対してシャントポイントである IPCV 及び流出路である IPS に対して経静脈的塞栓術 (TVE) を行い根治することができたので報告する。

【症例】

症例は 77 歳女性。既往歴としては、高血圧、脂質異常症があり、家族歴に特記すべきことはない。

現病歴は、20XX 年 6 月より右肩痛、右眼痛、右流涙を自覚。20XX+1 年 1 月より右拍動性耳鳴が出現し、同年 3 月初旬より右眼痛の悪化、右に強い眼瞼浮腫、右に強い結膜充血、右眼瞼下垂をきたしてきたため、近医を受診し、頭部 MRI,A にて CS の DAVF 疑いにて当科に紹介入院となった。

入院時現症は、意識清明、認知機能低下は認めず。右動眼神経麻痺による複視及び右眼瞼下垂を認めた。加えて身体所見として頭痛、右眼痛、右

拍動性耳鳴、眼瞼浮腫、結膜充血を認めた。

入院時 MRI では、軽度慢性虚血性変化を認めるが、出血性病変や脳梗塞、脳腫脹などの急性期変化は認められなかった。しかし T2WI 及び SWI 画像にて右半球の脳表静脈の拡張が認められ cortical venous reflux が示唆された。MRA-TOF にて IPS の尾側から外側にかけて網状の高信号が集簇し、IPS 及び CS、superior ophthalmic vein(SOV)、superficial middle cerebral vein(SMCV)が著明な高信号で描出されていた。以上より IPS の腹外側近傍にシャントを有し、IPS から CS へ逆流する DAVF と診断した。(Fig.1)

【血管造影】

全身麻酔下に、まずは右大腿動脈より 4Fr.レギュラーシース：ラジフォーカス・イントロデューサー II H (テルモ, 東京) を留置し、4Fr.CX カテーテル (ガドリウス・メディカル, 東京) にて診断造影を詳細に行った。左上行咽頭動脈 (APA: ascending pharyngeal artery) の選択的造影にて 3D-DSA を施行し、シャント部位を 3 次元的に詳細に検討した。

左 APA からの網状の feeder は、IPS の下面で一点に集簇し、造影剤が最も濃く描出されていることから³⁾、ここがシャントポイントと考えられた。その後 IPS 下外側で venous pouch を形成し、IPS に流出していた。IPS の近位部は閉塞しており、IPS へ流出したシャント血流は主に IPS を逆行性に CS へと流出し、SOV 及び SMCV からさらに脳表静脈へと逆流していた。また IPS から ACC にも流出しており ACC から近位の静脈も強く描出されていた。(Fig.2,3)

以上の所見より、非常に稀ではあるが、シャントポイントは解剖学的

に inferior petroclival vein (IPCV) に存在すると考えられた。

【治療】

治療は左大腿静脈に 6Fr.ロングシース：ラジフォーカス・イントロデューサー II H (テルモ, 東京) を留置し経静脈的にアプローチし、シャントポイント及び IPS に流出するまでの venous pouch を選択的にコイル塞栓する方針とした。右大腿動脈からは、造影用に 4Fr.CX カテーテルを左 ASA に選択的に留置し、術中適宜造影を行った。

まずはガイディングカテーテルとして 6Fr.Launcher (Medtronic, Minneapolis, USA) を 4Fr.CX カテーテル を同軸としてラジフォーカス・ガイドワイヤー 0.035 (テルモ, 東京) にて internal jugular vein (IJV) に誘導した。右 IPS の近位側は閉塞していたが、IJV と IPS 閉塞部の距離は短く、IPS の近位側からラジフォーカス・ガイドワイヤー 0.035 を用いて閉塞した IPS を通過させることができた。最終的に 6Fr.Launcher を IPS 近位部まで誘導留置でき、4Fr.CX カテーテルは抜去した。

次に 6Fr.Launcher を通して Echelon microcatheter (Medtronic, Irvine, CA, USA) をラジフォーカス GT ワイヤー 0.012 90 度 (テルモ, 東京) を用いて IPS から CS 内にまで誘導した。さらに 6Fr.Launcher より Headway 17 microcatheter (MicroVention, Aliso Viejo, CA, USA) を ASAHI CHIKAI 0.014 (朝日インテック, 愛知) を用いて IPS からシャントポイント直後の venous pouch まで誘導することができた。Headway 17 を主に使用し、シャントポイント及び venous pouch を塞栓し、もし IPS から CS への逆流が残存した場合、Echelon より IPS の遠位側を塞栓する方針とした。(Fig.4-A)

Headway 17 より、HyperSoft 3D 4×80mm (MicroVention, Aliso Viejo, CA, USA) ×2 本、Orbit Galaxy Complex XS 4×80mm (CERENOVUS, Irvine, CA, USA) ×3 本、Orbit Galaxy Complex Fill 4×120mm×2 本、HyperSoft 3D 3.5×80mm、HyperSoft 3D 2.5×60mm×2 本、Orbit Galaxy Helical XS 2×80mm×2 本、Orbit Galaxy Complex XS 3.5×75mm×2 本、HyperSoft 3D 3.5×80mm、HyperSoft 3D 2.5×60mm、HyperSoft 3D 3×60mm を順次使用し、シャントポイントから venous pouch、さらには IPS 流出口まで塞栓した。この時点でまだ IPS から CS への逆流が僅かに残存していたので、Echelon より、Orbit Galaxy Helical XS 2×60mm、Orbit Galaxy Helical XS 2×80mm×2 本を使用し IPS を閉塞した。これにより IPS から CS、SOV や SMCV への逆流を消失させることができ、治療を終了した。(Fig.4-B)

術後経過は良好で、新たな神経脱落症状の出現なく、右動眼神経麻痺は消失した。術前認められた拍動性耳鳴や眼痛、眼瞼浮腫、結膜充血も退院時には消失した。術後 1.5 ヶ月後の MRI、MRA で DAVF の完全消失が得られており、症状も消失し、術後 6 ヶ月後も再発なく経過している。

【考察】

DAVF は頭蓋内血管奇形病変の 10-15%程度と言われている⁴⁻⁶⁾。本邦での調査では年間発生率(検出率)が 0.29 人/10 万人と報告されている⁷⁾。

DAVF は動脈及び静脈の血管解剖が非常に複雑な疾患であり、詳細な術前検討が治療方針を決定するために非常に重要となる。特に後頭蓋窩の ACC 近傍の DAVF は静脈経路も多彩で複雑である。近年の 3D-CTA

や 3D-DSA 等の 3 次元的な画像診断能力の向上と、症例報告での啓蒙などもあり、ACC 近傍の DAVF の報告が増えてきているが⁷⁾、それでも ACC の DAVF の頻度は DAVF 全体の中で 3.6-5.1%程度であり^{5,6,8)}、本邦の全国調査では 5.0%と報告されており稀な疾患である⁷⁾。

CS から ACC に流入する静脈の中に、petroclival fissure (PCF) 下面 (頭蓋外) を走行する inferior petroclival vein (IPCV) がある。PCF 上面 (頭蓋内) を走行する inferior petrosal sinus (IPS) とは鏡面的な位置に存在し、両者には交通があるとされている^{1,2)}。通常 IPCV は細静脈であるが、頭蓋内シャント病変などで静脈圧が亢進した際には拡張し、cavernous sinus (CS) 内へのアクセスルートになることもあり知っておく必要のある静脈である¹⁾。今回の症例は IPCV にシャントを有する DAVF と考えられ、本部位にシャントを有する DAVF の報告は渉猟し得た限り過去に 1 症例のみであり、非常に稀なシャント部位と言える⁹⁾。術後の cone beam CT を見ると、頭蓋内の IPS 内の coil mass と、頭蓋外の IPCV の coil mass が連続性に認められ、術中所見、及び Kiyosue らの著書¹⁰⁾にある詳細な回転撮影の MPR (multi planer reconstruction) 再構成像所見と合わせて、シャント部位が IPCV に存在していることが確認できた。(Fig.5)

ACC や舌下神経管近傍の DAVF は、多くの場合拍動性耳鳴を認め、時に舌下神経麻痺などの症状が報告されているが^{5,6,11)}、近位側の IPS 閉塞により CS、SOV、SMCV への逆流をきたし、CS の DAVF 様の眼症状中心の症状を呈することがあるので注意が必要である^{4,5,9,11-15)}。本症例も過去の症例報告と類似し、主な流出経路である IPS の近位側が閉塞していることにより、IPS を逆行し CS へ流出し、さらに SOV へと逆流する

ことで CS の DAVF 様の眼症状を中心に呈していた。

治療は主に TVE(時に TAE や TAE+TVE)が行われているが^{5-8,11,13,15,16)}、静脈走行が複雑であり¹⁷⁾、シャントポイントや静脈走行の正確な同定のために、3D-DSAなどを駆使し、症例ごとの3次元的な血管解剖を理解し、入念に治療方針やアクセスルートを検討することが重要である^{11,14)}。逆行性に SOV 経路で TVE を行って治療した報告や¹⁸⁾、塞栓物質として Onyx を用いた TVE の報告なども認められる⁸⁾。今回我々の症例も TVE で根治することができた。シャントポイント及び連続する venous pouch を必要最小限のコイルで塞栓し、僅かに残った IPS への逆流に対して、予め IPS 遠位に挿入しておいたもう一本のマイクロカテーテルからコイルを追加することで、安全で良好な塞栓が得られた。

また我々は健側の左 APA の選択的な 3D-DSA を行うことにより、シャントポイントの詳細な解剖を理解することができた。造影剤が最も濃く描出されている部分がシャントポイントと考えられ³⁾、本症例も 3D-DSA の所見が有用であった。同側の外頸動脈の造影では病変部位と重なりが生じてわかりにくくなってしまうことがあるが、対側の APA から造影することで動静脈が重なることなく必要最小限の情報が得られ、DAVF の治療戦略を立てる上で有用である^{11,14)}。

【結論】

非常に稀な、IPCV(inferior petroclival vein)にシャントを有する DAVF の治療経験について報告した。IPS 経路での TVE を施行し、良好な閉塞と転帰を得た。シャントポイントや静脈走行の正確な同定のために、3D-DSAなどを駆使し、症例ごとの3次元的な血管解剖の理解が重要である

と考えられる。

<利益相反>

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

<文献>

- 1) Katsuta T, Matsushima T, Uda K. Surgical Anatomy of the Skullbase Venous System: Petroclival Region. Jpn J Neurosurg (Tokyo) 2008; 17: 738-744.
- 2) Tanoue S, Kiyosue H, Sagara Y, et al. Venous structures at the craniocervical junction: anatomical variations evaluated by multidetector row CT. Br J Radiol 2010; 83: 831-840.
- 3) Satow T, Murao K, Matsushige T, et al. Superselective shunt occlusion for the treatment of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. Neurosurgery 2013; 73(1 Suppl Operative): ons100-5.
- 4) Barnwell SL, Halbach VV, Dowd CF, et al. Dural arteriovenous fistulas involving the inferior petrosal sinus: angiographic findings in six patients. AJNR Am J Neuroradiol 1990; 11: 511-516.
- 5) Hsu YH, Lee CW, Liu HM, et al. Endovascular treatment and computed imaging follow-up of 14 anterior condylar dural arteriovenous fistulas. Interv Neuroradiol 2014; 20: 368-377.
- 6) Spittau B, Millán DS, El-Sherifi S et al. Dural arteriovenous fistulas

- of the hypoglossal canal: systematic review on imaging anatomy, clinical findings, and endovascular management. *J Neurosurg* 2015; 122: 883–903.
- 7) Kuwayama N, Kubo M, Endo S, et al. Present Status in the Treatment of Dural Arteriovenous Fistulas in Japan. *Jpn J Neurosurg (Tokyo)* 2011; 20: 12-19.
- 8) Takemoto K, Tateshima S, Rastogi S et al. Onyx embolization of anterior condylar confluence dural arteriovenous fistula. *J Neurointerv Surg* 2014; 6: e13.
- 9) Sugiura Y, Nishizawa S. Arteriovenous Fistula Involving the Inferior Petroclival Vein -Case Report-. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2011; 51: 45-47.
- 10) Kiyosue H: *Kekkannaichiryō no tame no Kekkankaibo Nojomyaku*, Edition 1. Tokyo, Gakken Medical Shujunsha Co., Ltd., 2017, 155-164.
- 11) Miyachi S, Ohshima T, Izumi T, et al. Dural Arteriovenous Fistula at the Anterior Condylar Confluence. *Interv Neuroradiol* 2008; 14: 303-311.
- 12) Yamada M, Miyasaka Y, Kitahara Y, et al. Dural arteriovenous malformation involving the inferior petrosal sinus-case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 1994; 34: 300-303.
- 13) Kato S, Fujii M, Tominaga T, et al. A case of dural arteriovenous fistula of the inferior petrosal sinus successfully treated by transarterial and transvenous embolizations. *No Shinkei Geka* 2002; 30: 981-984.
- 14) Sasaki T, Nagashima H, Satoh D, et al. Dural arteriovenous fistula around the anterior condylar confluent: Report of two cases. *JNET Journal of Neuroendovascular Therapy* 2008; 2: 212-216.

- 15) Iihoshi S, Miyata K, Sugino T, et al. Ocular Symptoms Associated with a Dural Arteriovenous Fistula of the Anterior Condylar Confluence: Case Report. *Surgery for Cerebral Stroke* 2013; 41: 285-289.
- 16) Ernst R, Bulas R, Tomsick T, et al. Three cases of dural arteriovenous fistula of the anterior condylar vein within the hypoglossal canal. *AJNR Am J Neuroradiol* 1990; 20: 2016-2020.
- 17) San Millán Ruíz D, Gailloud P, Rüfenacht DA, et al. The craniocervical venous system in relation to cerebral venous drainage. *AJNR Am J Neuroradiol* 2002; 23: 1500-1508.
- 18) Gentric JC, Ferré JC, Raoult H, et al. Endovascular treatment of inferior petrosal sinus dural arteriovenous fistula via percutaneous puncture of the superior ophthalmic vein. *J Neuroradiol* 2013; 40: 144-146.

< 図の説明 >

Figure 1: Brain MRI and MRA at the first visit

MRI (T2WI) does not show brain edema(A), but MRI(SWI) demonstrates the cortical venous reflux at the right cerebral hemisphere(B). MRA (C: MRA-TOF, D: MRA) shows dural arteriovenous fistula located near the right petrous apex.

Figure 2: Left ascending pharyngeal artery angiogram (A: AP view, B: lateral view)

The left ascending pharyngeal artery angiogram shows dural arteriovenous fistula located just ventrolateral to the right IPS. Since the proximal side of the right IPS is obstructed, the main venous drainage flow refluxes retrogradely from the IPS to the CS.

ACC: anterior condylar confluence, ACV: anterior condylar vein, CS: cavernous sinus, IPS: inferior petrosal sinus, LCV: lateral condylar vein, PCV: posterior condylar vein, SCS: suboccipital cavernous sinus, SMCV: superficial middle cerebral vein, SOV: superior ophthalmic vein, SS: sigmoid sinus, VVP: vertebral venous plexus

Figure 3: 3D left ascending pharyngeal artery angiogram (A: AP view, B: lateral view)

The shunt point is located at the IPCV (black arrows). The white arrows show the venous pouch in the IPCV, and the white arrow-heads show the feeders from the ascending pharyngeal artery. The white asterisk shows the occluded right IPS.

ACC: anterior condylar confluence, ACV: anterior condylar vein, CS: cavernous sinus, IPCV: inferior petroclival vein, IPS: inferior petrosal sinus, IJV: internal jugular vein, JB: jugular bulb, LCV: lateral condylar vein, PCV: posterior condylar vein, SCS: suboccipital cavernous sinus, SMCV: superficial middle cerebral vein, SOV: superior ophthalmic vein, SS: sigmoid sinus, VVP: vertebral venous plexus

Figure 4: The schema of our treatment strategy (A) and the X-ray images of the coil mass in the time course of our procedure (B)

We performed transvenous coil embolization by the double catheter technique through the right IPS. The shunt point and the venous pouch in the IPCV were embolized through the Headway 17 microcatheter (blue line and arrow), and the IPS was embolized through the Echelon microcatheter (green line and arrow).

The black arrows show the shunt point and the closed white arrows show the venous pouch in the IPCV. The black arrow-heads show the feeders from the ascending pharyngeal artery, and the white arrow heads show the coil mass in the IPS. The black asterisk shows the occluded right IPS.

ACC: anterior condylar confluence, ACV: anterior condylar vein, CS: cavernous sinus, IPCV: inferior petroclival vein, IPS: inferior petrosal

sinus, IJV: internal jugular vein, JB: jugular bulb, LCV: lateral condylar vein, PCV: posterior condylar vein, SCS: suboccipital cavernous sinus, SMCV: superficial middle cerebral vein, SOV: superior ophthalmic vein, SS: sigmoid sinus, VVP: vertebral venous plexus

Figure 5: The CT after treatment (A: axial view, B: sagittal view, C: coronal view, D: extra cranial 3D image of the skull base)

The CT after embolization demonstrates the coil mass in the IPCV (white allows) at the extracranial surface of the petroclival fissure (black arrows) and in the IPS (white arrow-heads). The blue area in D-b shows the coil mass with higher CT number than the skull base bone.

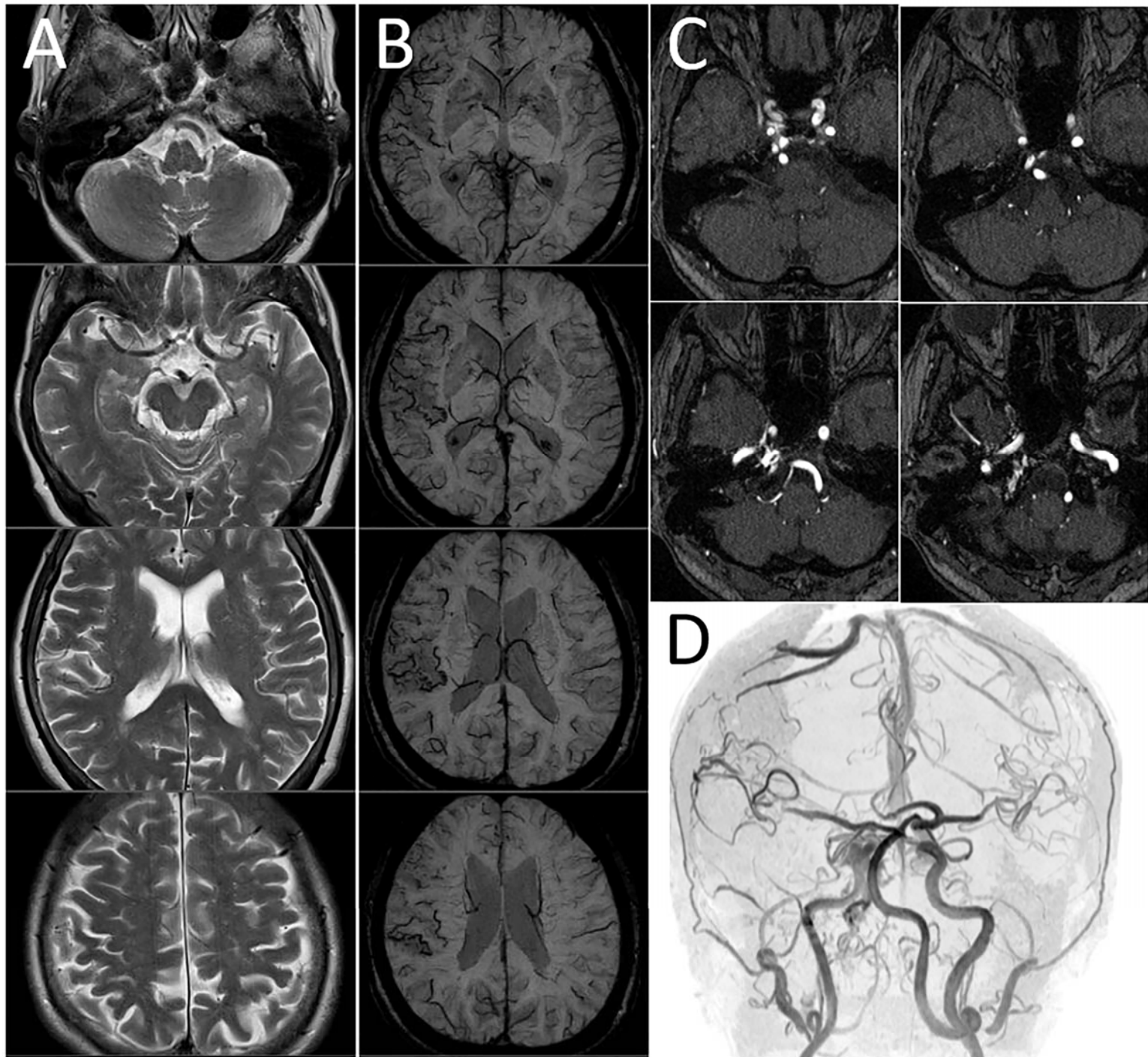


Fig.1

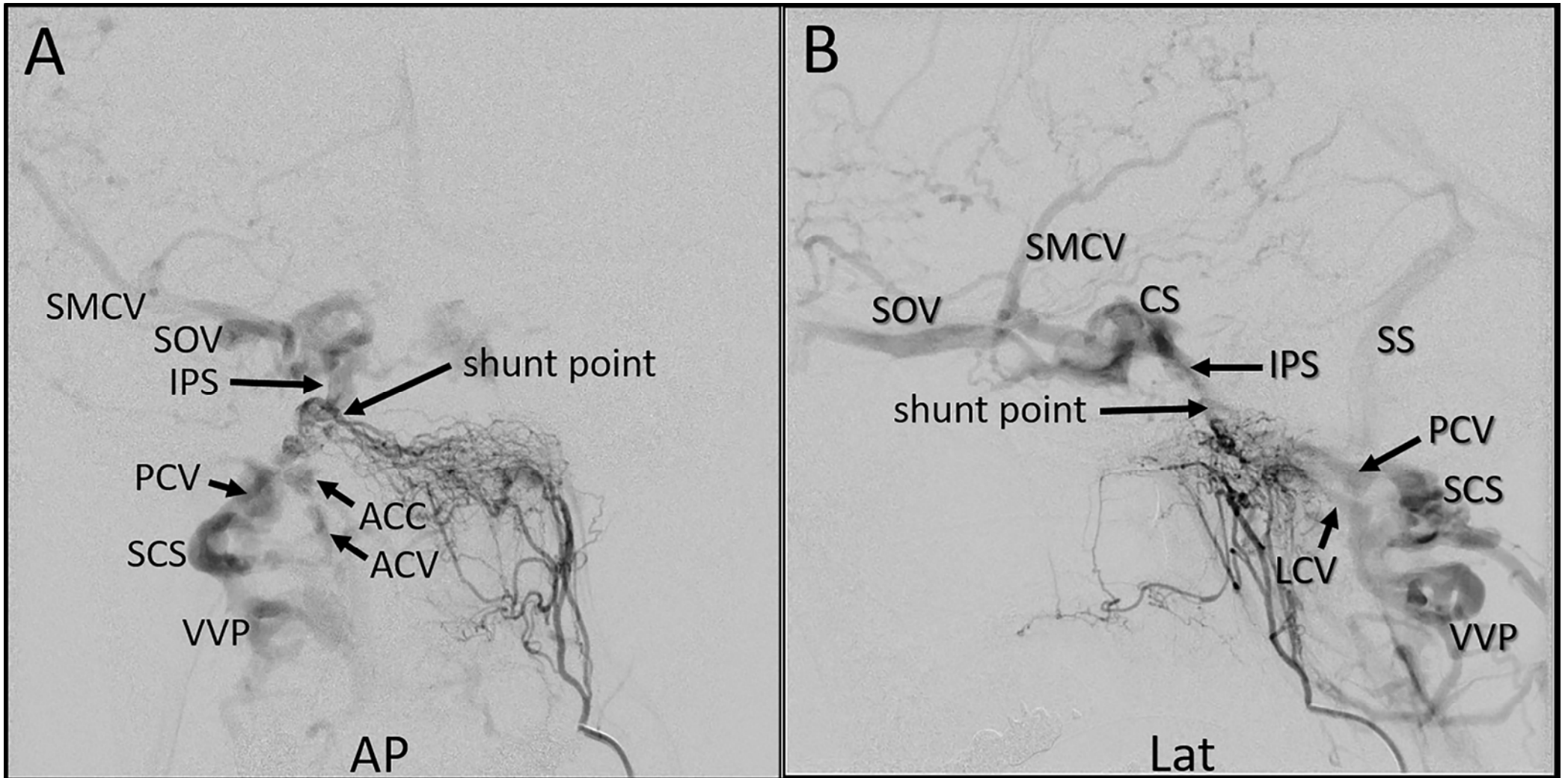


Fig.2

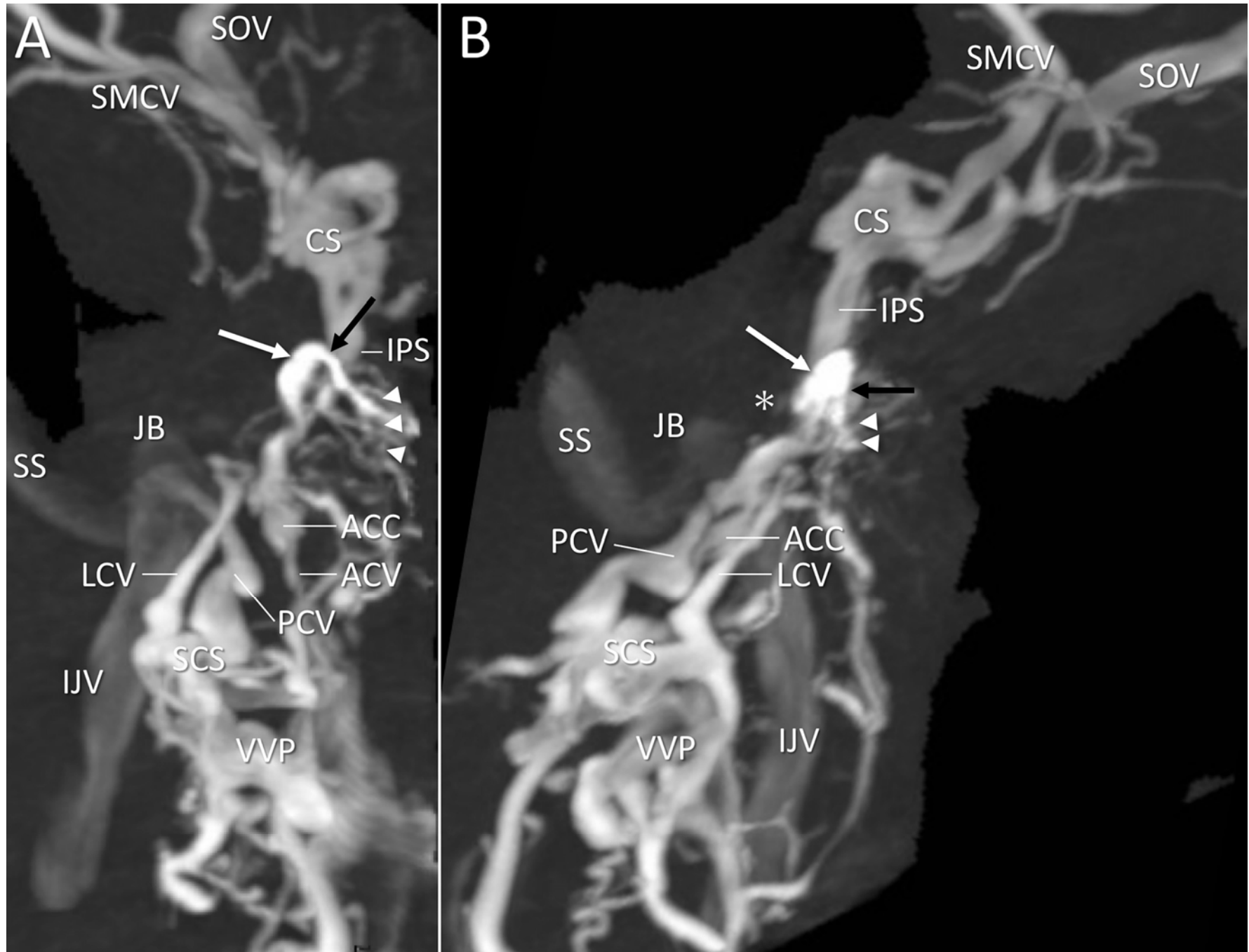


Fig.3

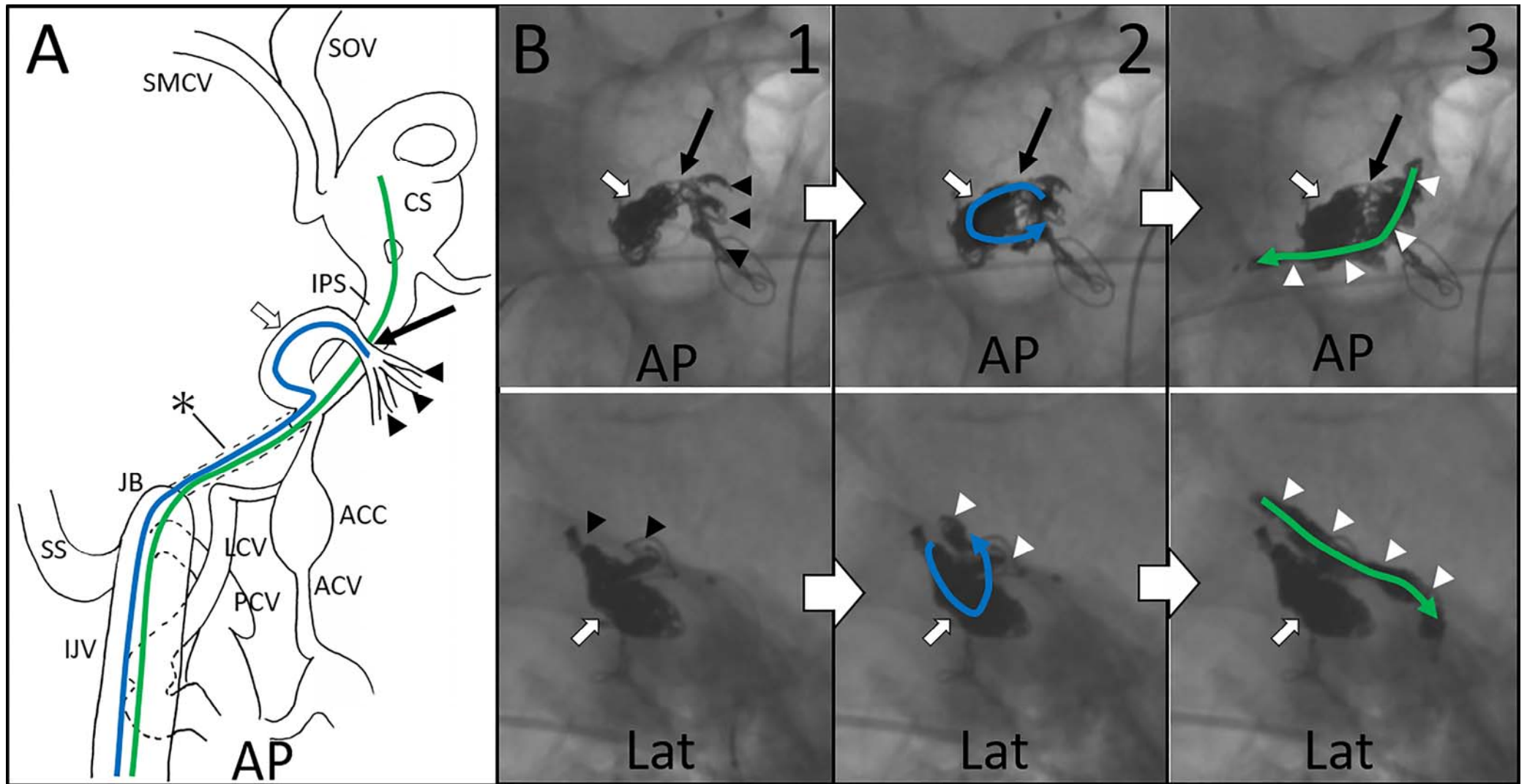


Fig.4

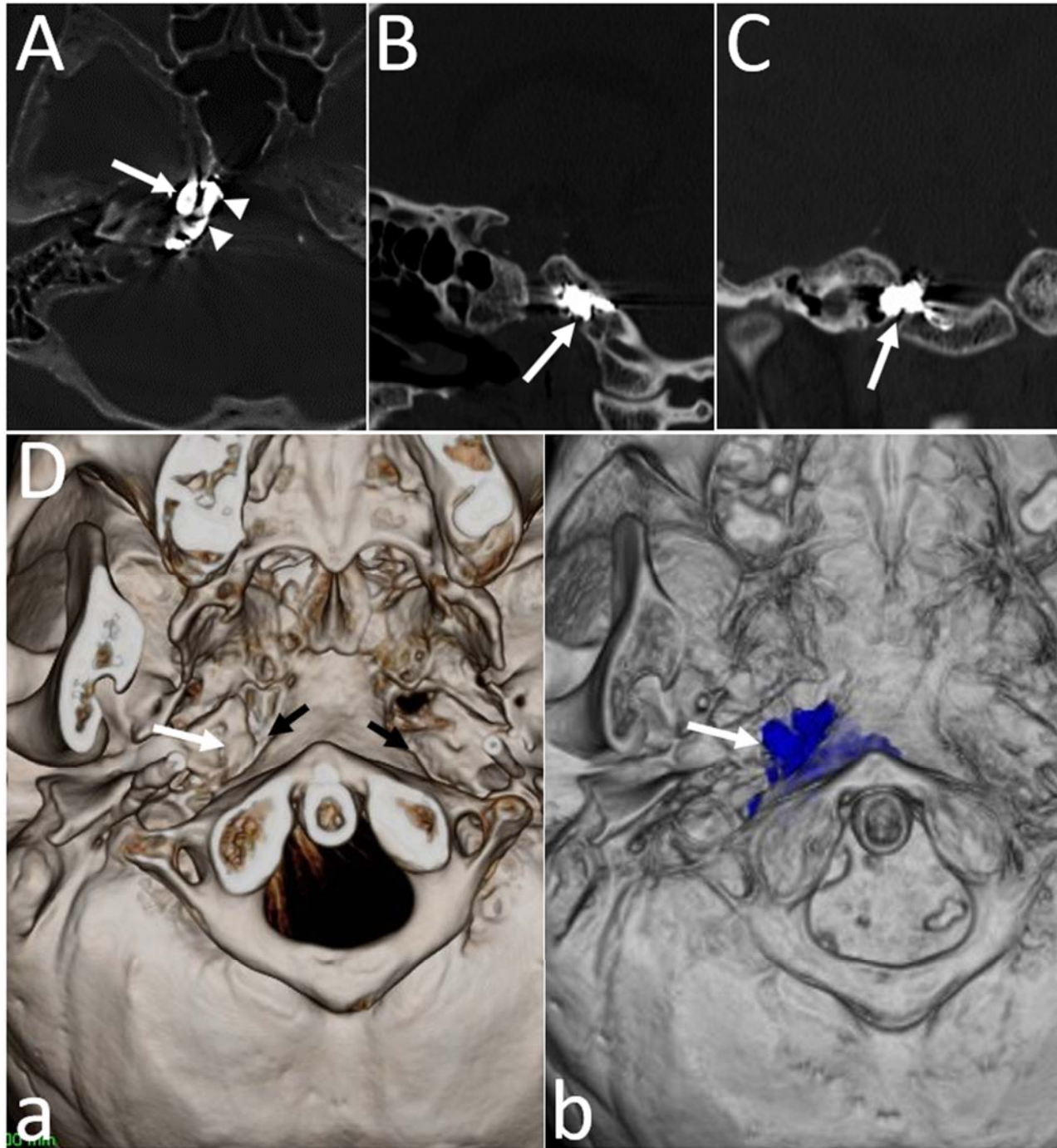


Fig.5