

論文種別：症例報告

題名：

上眼静脈直接穿刺により急激な血栓化および術後非動脈炎性虚血性視神経症を生じた海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例
-ドレナーシルートからみた発生機序の考察-

著者：

篠田 成英¹，森 正文¹，田村 昌吾¹，頃末 和良¹，古瀬 繁¹，今井 啓登²，榎本 哲也³，富永 亮一⁴，政平 俊雄⁴，三木 達也⁴，日浦 智哉⁴，下田 賢⁴，諏訪 圭一朗⁴，小幡 淳一⁴，足立 六馬⁴，松本 康史⁵，甲村 英二⁶

¹ 医療法人社団 六心会 恒生病院 脳神経外科

² 医療法人社団 六心会 恒生病院 麻酔科

³ 医療法人社団 六心会 恒生病院 臨床工学士

⁴ 医療法人社団 六心会 恒生病院 放射線技師

⁵ 一般財団法人広南病院 血管内脳神経外科

⁶ 神戸大学大学院医学系研究科 脳神経外科分野

連絡先：篠田 成英

医療法人社団 六心会 恒生病院 脳神経外科

〒651-1505 兵庫県神戸市北区道場町日下部 1788 番

TEL：078-950-2622 内線 569

Mail：shinoda8989@yahoo.co.jp

キーワード：海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻，上眼静脈直接穿刺，虚血性視神経症，血栓化

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。

要旨

【目的】海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻に対する上眼静脈直接穿刺により，急激な血栓化および術後非動脈炎性虚血性視神経症を生じた一例を経験し，発生機序の考察を含め報告する．

【症例】74歳，女性，複視・視力障害の精査で海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻と診断された．後方経路からのアプローチは困難であったため，最終的に上眼静脈直接穿刺法による経静脈的塞栓術を行った．ドレナージュールットが集中していた上眼静脈から穿刺したことで上眼静脈の血栓化を生じ，また急激な血行動態の変化により術後非動脈炎性虚血性視神経症を併発した．

【結論】上眼静脈の直接穿刺を行う場合，ドレナージュールットを十分に検証した上で穿刺方法やヘパリン化も検討すべきである．

緒言

海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻 (cavernous sinus dural arteriovenous fistula: CSdAVF) に対する血管内治療は、基本的には経静脈的アプローチによる shunt 部または shunt が開口している sinus のコイルパッキングが一般的である。通常経大腿静脈アプローチにて、下錐体静脈洞 (inferior petrosal sinus; IPS) を通じて CS へ進入するが、アプローチ困難な場合は上錐体静脈洞 (superior petrosal sinus; SPS) や顔面静脈 (facial vein; FV)、中側頭静脈 (middle temporal vein) を介して上眼静脈 (superior ophthalmic vein; SOV) 経由で進入することもある。それでもアプローチができない場合は SOV の直接穿刺や開頭による sylvian vein の直接穿刺も考慮しなければならない^{1,2}。SOV 穿刺時のヘパリン化に関して出血性合併症の報告も多く、全身ヘパリン化は行わないことも多い。今回我々も全身ヘパリン化は行わず SOV 直接穿刺により CSdAVF の治療を行ったが、治療中に SOV の急激かつ進行性の血栓化を生じ、穿刺方法やヘパリン化の必要性に関して改めて検討するべきであると考えた。治療中に急激な血栓化を生じた場合、血栓化が眼窩レベルまで及ぶと失明などに至

る可能性もある。本症例では術後視力障害の悪化を生じたが、血栓化は網膜レベルには生じていなかった。視力障害の原因としては血栓化そのものが直接的な原因ではなかったが、眼科検査の結果から、急激な血行動態の変化が原因で非動脈炎性虚血性視神経症 (non-arteritic ischemic optic neuropathy; NA-ION) を合併したものと考えられた³。ドレナーシルートが集中している SOV に対し直接穿刺を行った場合、機械的もしくは物理的に還流障害が生じることで急激に血行動態が変化し血栓化する可能性が考えられた。また血栓化が網膜レベルに及ばない場合も今回のように視神経の障害を生じることもあり、このような合併症を伴わないためにも穿刺方法やヘパリン化の必要性に関しては事前に議論しておく必要があると考えられる。頻用される手技ではないが SOV 直接穿刺を試みる場合はドレナーシルートを事前に十分吟味し治療に望むことで、血栓化や合併症の軽減に繋がると考え、本症例の報告をする。

症例呈示

患者：74歳，女性

主訴：複視，視力低下

既往歴：高血圧

家族歴：特記事項なし

現病歴：上記主訴のため近医眼科を受診．点眼薬の処方を受けたが症状は徐々に増悪した．日常生活でも介助を要す状態までADLは低下，他院で頭部MR検査を実施，CSdAVFが疑われ精査・加療目的に当院紹介となった．

所見：意識清明，両眼とも視力は0.1まで低下（矯正視力：左右ともに0.1），結膜充血を認め，全方向に眼球運動制限があり，特に両側外転制限が顕著であった．脳血管撮影では，両側 meningohipophyseal trunk (MHT)，両側 artery of foramen rotundum，右 middle meningeal artery (MMA)，左 accessory meningeal artery (AMA) を feeder とし，shunt pouch は右 CS 内側に収束していた．右 SOV 及び intercavernous sinus を介し左 CS から左 SOV へ流れる流出路を認めていた．以上から Barrow

Type D, Cognard Type II a の CSdAVF と診断した (Fig. 1).

経過： 全身麻酔下，大腿静脈経由で右 internal jugular vein から治療を試みた．IPS 及び SPS は完全閉塞しており，様々なカテーテルやワイヤーで進入を試みたが開通させることは不可能であった (Fig. 2)．また FV の選択も試みたが末梢部が閉塞していたため選択できなかった (Fig. 3)．左 S 状静脈洞以降は閉塞しており，左側からのアプローチも断念した．そのため flow reduction に切り替えて右 MMA 及び左 AMA の経動脈的塞栓術 (transarterial embolization ; TAE) を実施した．わずかに shunt flow は減弱したが根治には至らなかった．

神経症状は改善せず追加治療は必要と考えられ，開頭による頭蓋内静脈経由，直接穿刺による FV もしくは SOV 経由での治療を検討した．ただしハイブリッドルームを有しておらず安全性に欠けること，また眼角静脈の蛇行も強いことから，比較的アクセスルートが選択しやすいと思われた SOV の直接穿刺による治療を試みることになった．全身麻酔下，5Fr.診断用カテ

ーテルを右総頸動脈に留置，3D road map を作成した上で，上眼静脈直接穿刺を行った．眼窩上切痕をメルクマルにし，当初は cut down は行わず 20G エラスター針を経皮的に穿刺した．血液の逆流を認め，比較的表で SOV の穿刺ができたと思われた．しかししばらくすると逆流は消失しマイクロカテ及びマイクロワイヤーの挿入が困難となった．そのため眉下内側部に 2cm 程度皮膚切開を置き，目視的に SOV を直接穿刺することとした．肉眼的に SOV は拡張しており (Fig.4 A)，エコードップラーでも動脈性に逆流する flow を捉えた (Fig.4 B)．再度 20G エラスター針にて穿刺，拍動性の逆流を確認した (Fig. 4C)．Exersior SL-10 STR (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) 及び CHIKAI black 0.014 (朝日インテック，東京) を挿入，CS への選択を試みたがマイクロガイドワイヤーがスムーズに進まなかった (Fig.4 D)．診断カテから撮影をやり直したところ，shunt は残存しているが流出路となっていた SOV の描出は完全に認めなくなっていた (Fig.4 E)．エラスターを抜去，エコードップラーにて上眼静脈内の血流は認めず，血栓化が疑われた (Fig.4 F)．ヘパリン化は

出血性合併症を懸念し行わなかった。可視範囲で SOV を何度か穿刺したが逆流はなく、深部に剥離を進めて眼窩深部 SOV への穿刺を行った。深部 SOV は blind 操作になるため、orbital roof に向けて穿刺し徐々に眼球側に針を向けて SOV の穿刺を行なった。わずかに血液の逆流を認め、再度 Exersior SL-10 STR 及び CHIKAI black 0.014 にて深部 SOV から侵入した。SOV と CS の移行部で高度狭窄があり進入困難、マイクロガイドワイヤーを GT ワイヤー 0.012 (Terumo, 東京) に変更すると CS の shunt 部までマイクロカテーテルを誘導することができた。shunt 部には Target 360 Soft (Stryker) 6mm×20cm 1 本, Target 360 Ultra 5mm×15cm 7 本, Target 360 Ultra 4mm×15cm 1 本, Target Helical Ultra 4mm×15cm 4 本, Target Helical Ultra 3mm×10cm 2 本を留置, 合計 15 本にて塞栓した (Fig.4 G)。これにより病変は消失し手技を終了とした。

術後経過：術直後から右眼視力の更なる悪化を生じ、術中血栓化による網膜中心静脈の閉塞を疑い、術翌日に眼科を受診した。左視力は 0.1 から 0.2 (矯正視力：0.6) まで改善していたが、右眼の視力は悪化しており

光覚弁レベルとなっていた。両側外転神経障害は改善しておりわずかに右方注視で右眼の眼球運動制限が残る程度であった。しかし眼底検査では網膜中心動静脈の還流異常は認めず (Fig.4 H), 眼圧も正常であったことから視神経管レベルでの還流障害と診断された。また右視神経は MRI 拡散強調画像で輝度上昇, 拡散係数画像は低下が見られたことから (Fig. 4I), 眼科検査と合わせて非動脈炎性虚血性視神経症 (non-arteritic ischemic optic neuropathy; NA-ION), また病変部が視神経管レベルであることから非動脈炎性後部虚血性視神経症 (non-arteritic posterior ischemic optic neuropathy; NA-PION) と診断された。治療翌日から抗凝固療法やステロイド, ビタミン補充などを姑息的に行なったが視力障害に関しては改善には至らなかった。左眼視力や眼球運動障害は改善, また複視も消失したことから日常生活は介助なしで送れるようになり, 脳血管撮影及び MR 検査で再発がないことを確認した後 (Fig. 5), 独歩退院された。

考察

CSdAVF は、shunt 増生後に後方経路である IPS の閉塞が先行し、前方経路である SOV や下眼静脈 (inferior ophthalmic vein: IOV) の閉塞が追隨するとされる^{4,5}。通常後方経路の閉塞が進み、SOV など前方ドレナージが集中する時期には、CCF 三主徴のほか外転神経麻痺などの神経症状を呈するとされ、さらに閉塞が進み、SOV から顔面静脈への出口が閉塞すると眼静脈の高圧うっ滞が起こり、眼圧が急激に上昇して視力障害を生じると報告されている。この時期では shunt は存在するが流出路が閉ざされているために急激な血栓化が進み、いわゆる paradoxical worsening の状態となる。血栓化後に自然治癒することもあるが、その前に不可逆的な緑内障や網膜の血流障害を呈して失明する場合や頭蓋内逆流を生じ脳出血を生じる場合もあるため、緊急で shunt 閉塞が必要とされる。

本症例では SOV 穿刺直後に機械的もしくは物理的にドレナージルート of 還流障害が生じ、急激な血行動態の変化からメインのドレナージルートの SOV が血栓化したと考えられた。血栓化 SOV を直接穿刺し治療

に至った症例は 2 例報告があるが^{6,7}、いずれも自然経過中に血栓化したものであり、治療中に血栓化を生じた症例は報告されていない。SOV 直接穿刺による治療は頻用される手技ではないが、後方経路が全て閉塞し前方経路にのみドレナージルートが残存している場合に多いと考える。Satomi ら⁴の報告では流出静脈路の閉塞の進行度により 3 つの病期に分けられているが、我々は提唱されている Stage 分類についてさらに細分化を行なった (Fig. 6)。後方経路が閉塞し、特に SOV にドレナージルートが集中している 2A 期に SOV から直接穿刺を行う場合、機械的もしくは物理的にドレナージルートの還流障害を生じやすいと考えられる。ドレナージルートが血栓化した場合、治療困難となるだけでなく、術中もしくは術後に予期せぬ合併症を併発してしまう可能性があることも認識しておくべきである。

SOV 穿刺による治療合併症としては、穿刺に伴う眼窩内出血や眼球損傷、視神経損傷や眼球運動神経の損傷、内頸動脈損傷などの報告がある。血管内治療では全身へパリン化が通例ではあるが、SOV 直接穿刺によ

る治療症例では出血性合併症を懸念し全身へパリン化は行わなかった報告も認められる^{8,9}。ただし本症例の様にドレーナージルートが集中している場合のSOV直接穿刺に関しては血栓化のリスクが高いと考えられ、全身へパリン化することで血栓化のリスクはある程度軽減出来るのではないかと考えた。また複数回穿刺による機械的刺激のリスクを軽減するために、最初から皮膚切開を置いた上でSOVの走行を目視しながら穿刺を行うべきであった。

今回治療後の視神経障害の悪化の原因として、当初は血栓化による網膜中心静脈の閉塞が疑われたが、眼底検査では網膜レベルでの還流は保たれており、MR所見と合わせてNA-PIONと診断された。IONは視神経乳頭の栄養血管の急性循環障害によって起こるとされている。血管炎による動脈炎性 arteritic ION (A-ION) と動脈硬化や血行動態変化による非動脈炎性による non-arteritic ION (NA-ION) に分類され、また発症部位から網膜レベルでの障害により乳頭浮腫を認める前部 ION (anterior ION; AION) と視神経レベルでの障害により乳頭浮腫を認めない後部 ION (posterior ION;

PION) に分けられる¹⁰。PIONは眼底検査が正常で、かつ、MRI拡散強調画像及び拡散係数画像による評価が診断に有用とされている¹¹。本症例では、眼底検査にて網膜動静脈障害は認めず眼圧も正常であったこと、右視神経はMRI拡散強調画像で輝度が上昇し、拡散係数画像で低下が見られたことからNA-PIONの診断となった。NA-IONの危険因子として、高血圧、糖尿病、脂質代謝異常、喫煙などが挙げられるが、その発症機序は未だ不明とされている。既存の報告では頸動脈ステント留置術後¹²やdAVFに対するTAE後¹³、大動脈弓部置換術後¹⁴に発症した報告もあり、血行動態の大きな変化との関連性が考えられている。本症例でも急激な静脈還流の変化がNA-IONの発症に強く影響したものと考えられた。治療法としてはステロイドや抗浮腫療法などが試みられることも多いが、現在のところ確立されたものはない。

結語

SOV 穿刺直後の急激な血栓化が治療および治療後経過に影響を与えた一例を経験した。SOV の穿刺手技自体は煩雑ではないが、ドレナージルートの状態によっては急激な血栓化を生じる可能性があることを認識し、事前にドレナージルートを十分に把握し、必要に応じてヘパリン化をすべきかどうかを検討する必要があると思われた。また最初から皮膚切開を置いた上で穿刺を行うことで、SOV の複数回穿刺による機械的刺激のリスクを軽減できると思われた。急激な静脈還流の変化が、網膜中心静脈の血栓化のみならず NA-ION などの眼病変を生じる可能性があることも、常に考慮しておく必要がある。

利益相反の開示

筆頭著者および共著者全員が本論文に開示すべき利益相反はありません。

文献

1. Kazekawa K, Iko M, Sakamoto S, et al.
Dural AVFs of the cavernous sinus:
transvenous embolization using a direct
superficial temporal vein
approach. *Radiation Medicine* 2003; 21:
138-141.
2. Kuwayama N, Endo S, Kitabayashi M, et
al. Surgical transvenous embolization of
a cortically draining carotid cavernous
fistula via a vein of the Sylvian
fissure. *AJNR Am J Neuroradiol*
1998; 19: 1329-1332.
3. Hashimoto M, Ohtsuka K, Suzuki Y, et al.
A case of posterior ischemic optic
neuropathy in a posterior-draining dural
cavernous sinus fistula. *Journal of
neuro-ophthalmology* 2005; 25: 176-179.

4. Satomi J, Satoh K, Matsubara S. Angiographic changes in venous drainage of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae after palliative transarterial embolization or observational management: A proposed stage classification. *Neurosurgery* 2005; 56: 494–502.

5. Suh DC, Lee JH, Kim SJ, et al. New concept in cavernous sinus dural arteriovenous fistula: correlation with presenting symptom and venous drainage patterns. *Stroke* 2005; 36: 1134–1139.

6. Wakui D, Terada T, Oshima K, et al. A case of carotoid cavernous fistula treated with a direct puncture to the thrombosed superior ophthalmic vein. *Journal of*

Neuroendovascular Therapy 2013; 7:
345 - 350.

7. Chen WH, Tsai IC, Huang HC, et al:
Transcutaneous puncture of the superior
ophthalmic vein for embolization of
dural carotid-ophthalmic fistula. *Interv
Neuroradiol* 2008; 14: 9-11.

8. Levibovich I, Modjtahedi S, Duckwiler
GR, et al: Lessons learned from difficult
or unsuccessful cannulations of the
superior ophthalmic vein in the
treatment of cavernous sinus dural
fistulas. *Ophthalmology* 2006; 113:
1220-1226.

9. Quinones D, Duckwiler G, Gobin PY, et al.
Embolization of dural cavernous fistulas via superior

ophthalmic vein approach. *AJNR Am J Neuroradiol* 1997; 18: 921-928.

10. Hayreh SS. Ischemic optic neuropathy. *Progress in retinal and eye research* 2009; 28: 34-62.

11. Al-Shafai LS, Mikulis DJ. Diffusion MR imaging in a case of acute ischemic optic neuropathy. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006; 27: 255-257.

12. Nanto M, Tanigawa S, Tkado M, et al. A case of ischemic optic neuropathy after carotid artery stenting. *JNET J Neuroendovasc Ther* 2014; 8: 52-57.

13. Yamamoto M, Yoshida K, Nonaka S, et al. A case of ischemic optic neuropathy after transarterial embolizations for cavernous sinus dural arteriovenous fistula. *JNET J Neuroendovasc Ther* 2013; 7: 18-23.

14. Kanabuchi K, Yamaguchi M, Ueda T, et al. Case of ischemic optic neuropathy developed eleven days after an aortic arch replacement. *Tokai J Exp Clin Med* 2011; 36: 112-115.

Fig. 1

Right common carotid angiograms (A: anteroposterior view, B: lateral view) revealing a right cavernous sinus dural arteriovenous fistula (CSdAVF) fed by meningo-hypophyseal trunks (MHTs), artery of foramen rotundum and right middle meningeal artery (MMA), and draining into bilateral superior ophthalmic vein (SOV). (C) (D) Pre-operative time-of-flight magnetic resonance angiography.

Fig. 2

(A) The venous phase of right common carotid angiography. (B) Catheter venography for the assessment of internal jugular veins.

Fig. 3

Facial vein was occluded at the distal portion (arrow heads).

Fig. 4

(A) The image showing the over-swelling right SOV. (B) Doppler ultrasonography showed reversed flow. (C) A 20-gauge puncture needle was inserted into the SOV. (D) Plain X-ray lateral view films. (E) The peripheral part of the SOV could not be visualized (arrow heads), but the shunting point remained (arrow). (F) Doppler ultrasonography showed thrombosed SOV. (G) Plain X-ray films showing placed coils to the shunting point. (H) Right fundus photograph revealed normal results. (I) Diffusion-weighted image (DWI) shows a high signal intensity area and apparent diffusion coefficient (ADC) image shows a decreased signal intensity area on the right optic nerve.

Fig. 5

Cerebral angiogram after embolization (A: AP view, B: lateral view) showing complete obliteration of the CSdAVF. (C)(D) Post-operative time-of-flight magnetic resonance angiography.

Fig. 6

The classification of venous drainage patterns. In Type 1, both anterior and posterior drainage routes are open; in Type 2, the posterior drainage route is closed, whereas the anterior drainage route is open (Type 2A: the venous drainage converges on SOV, Type 2B: the venous drainage does not converge on SOV); and in Type 3, both the posterior and anterior drainage routes are closed. IOV; inferior ophthalmic vein, IPS; inferior petrosal sinus, PP; pterygoid plexus,

S O V ; superior ophthalmic vein, S P S ; superior
petrosal sinus.

图表

Fig. 1

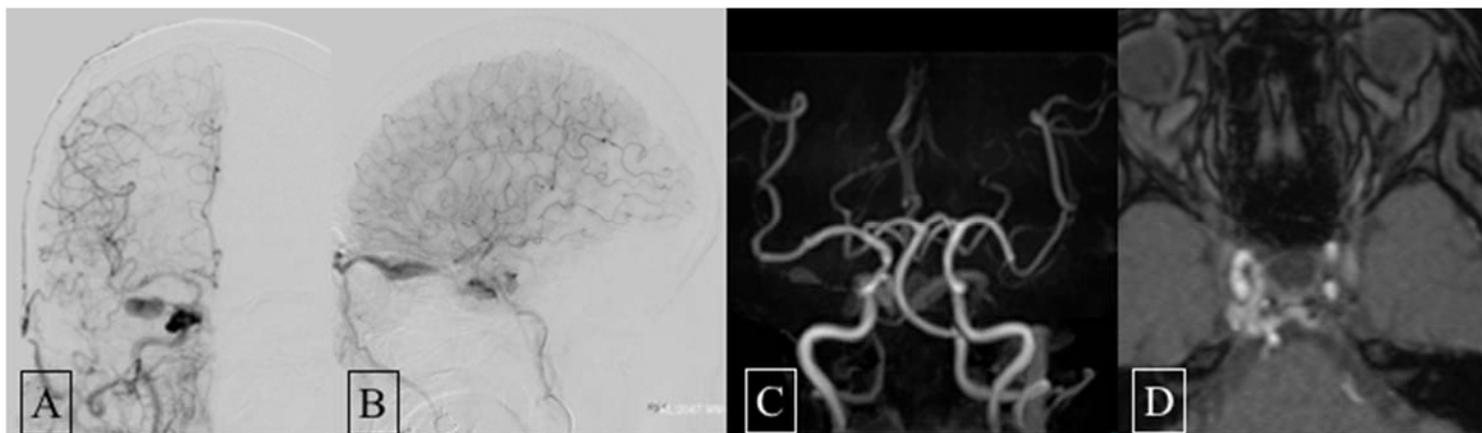


Fig. 2



Fig. 3

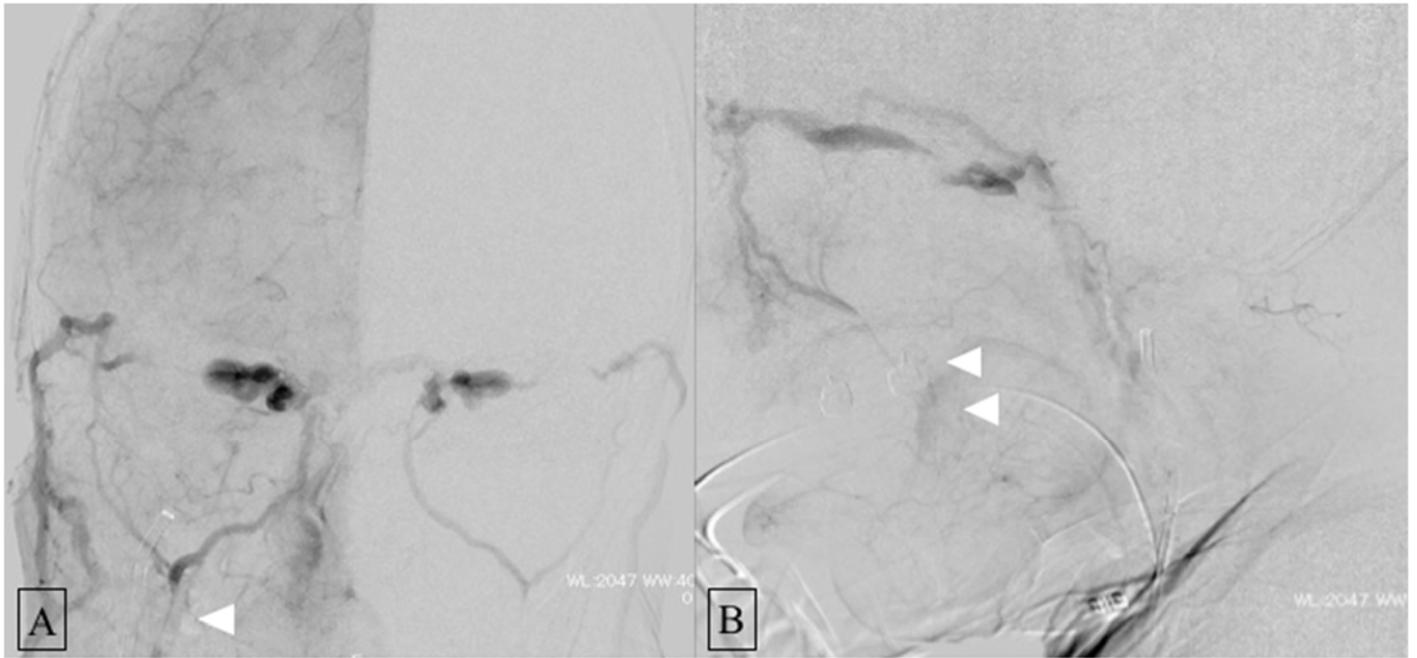


Fig. 4

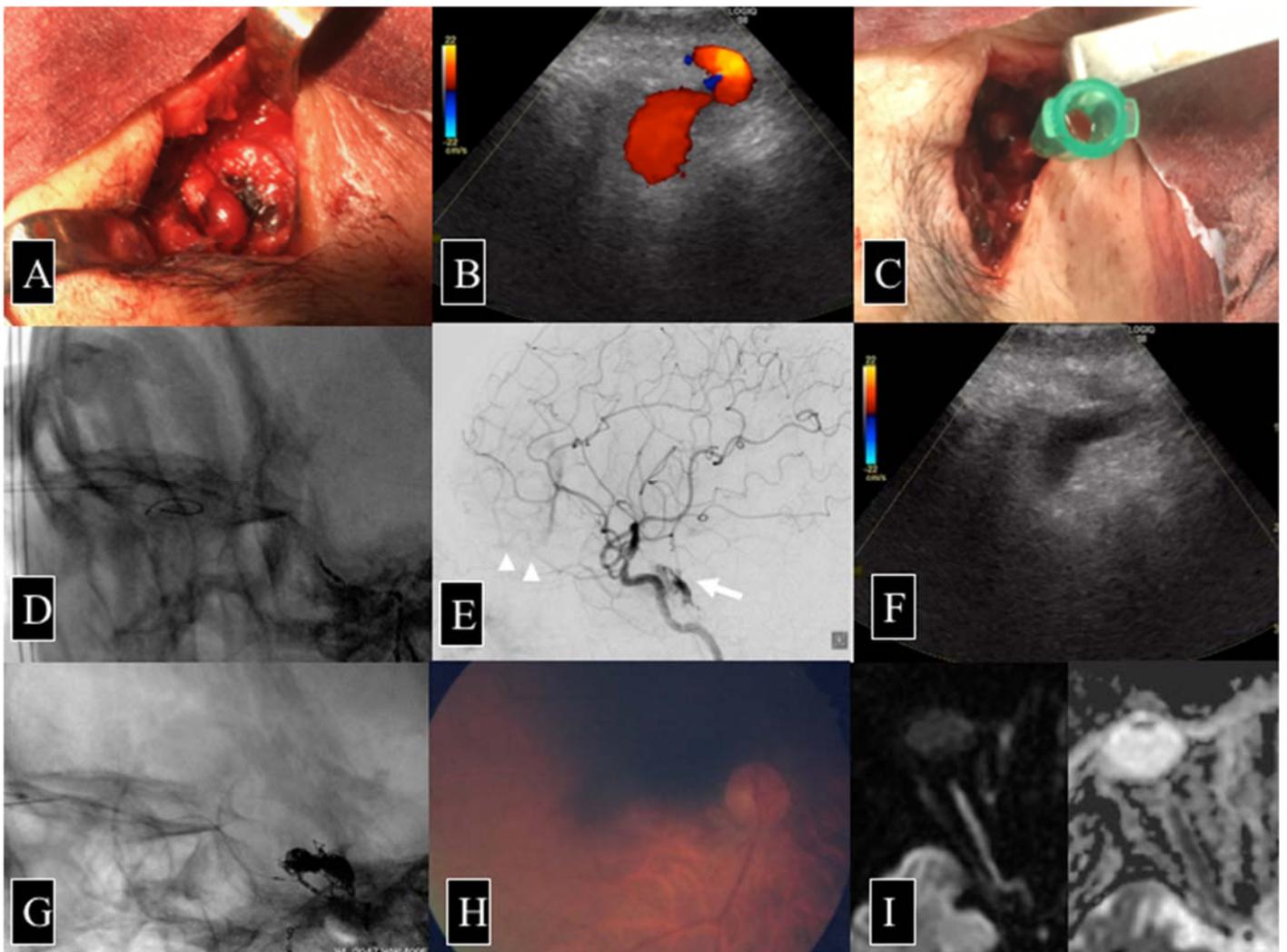


Fig. 5

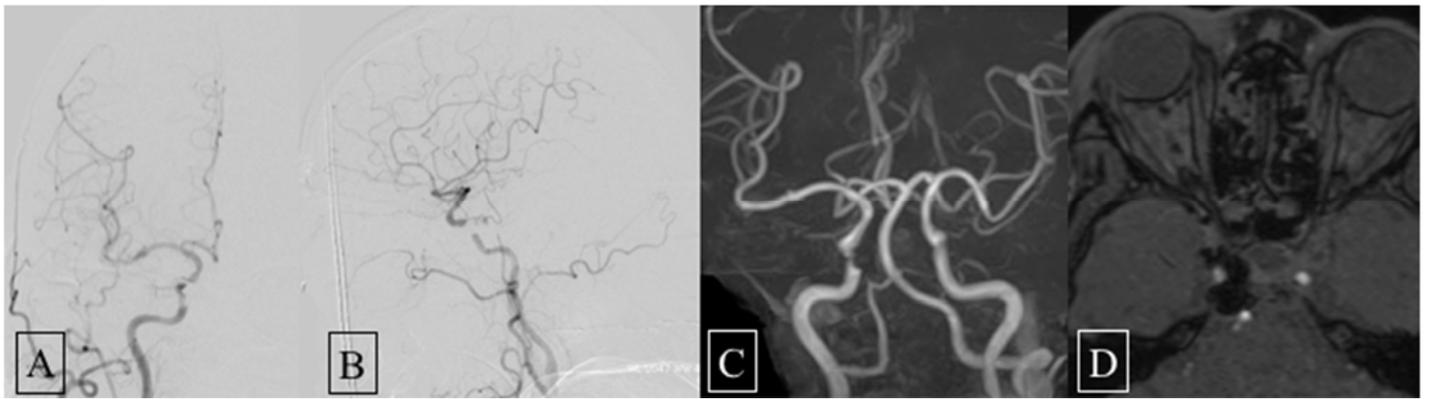


Fig. 6

