

症例報告

Balloon支援によるflow control下での経動脈塞栓術で治癒し得た脊髄硬膜外動静脈瘻の1例

鵜山 淳¹⁾、藤田敦史²⁾、高石吉将¹⁾、近藤 威¹⁾、荒井 篤¹⁾、岡田真幸¹⁾、藤原大悟¹⁾、甲村英二²⁾

1) 新須磨病院 脳神経外科

2) 神戸大学大学院 医学系研究科 脳神経外科学分野

連絡著者（筆頭著者）の連絡先

鵜山 淳

〒 654-0048

神戸市須磨区衣掛町 3-1-14

新須磨病院脳神経外科

電話 078-735-0001

FAX 078-735-5685

E-mail auyama811@yahoo.co.jp

Key Words: spinal epidural arteriovenous fistula, transarterial embolization, NBCA, balloon

図 6 点

宣言

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関紙「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

硬膜内逆流を伴った脊髄硬膜外動静脈瘻（SEDAVF）の経動脈的塞栓術（TAE）では、シャント部血流の flow control が重要である。関与する複数の segmental artery（SA）のうち 1 本を balloon による遮断下に TAE にて加療した SEDAVF の 1 例を報告する。

症例

68 歳男性。歩行障害と排尿障害が出現し、腰椎 MRI で脊髄円錐近傍に拡張蛇行した静脈像を認めた。脊髄血管撮影の結果、右第 2（L2）及び第 3 腰動脈（L3）からの feeder が関与し、硬膜外静脈叢を介し硬膜内への静脈逆流を伴う SEDAVF と診断した。L3 を balloon で閉塞し flow control 下に L2 からの feeder より 14%NBCA を注入しシャント血流の完全消失が得られた。

結論

複数の SA が関与する SEDAVF の治療において、そのうちの 1 本の balloon による閉塞下での TAE は有用な方法である。（290 字）

英文要旨

Objective: In transarterial embolization (TAE) of spinal epidural arteriovenous fistula (SEDAVF), it is essential to control the blood flow at the shunt point. We report a case of SEDAVF treated with TAE with

occluding one of several segmental arteries (SAs) involved in the shunt using a balloon.

Case Presentation: A 68-year-old male presented with gait disturbance and bladder bowel dysfunction. Lumbar spinal MRI showed a dilated and tortuous vein around the spinal conus. Spinal angiography revealed a SEDAVF with intradural venous reflux through the epidural venous plexus fed by the branches of the right 2nd and 3rd lumbar arteries (L2 and L3). We infused 14% n-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) from the feeder of the L2 under the flow control by occluding L3 using a balloon and achieved complete obliteration of the arteriovenous shunt.

Conclusion: In treatment of SEDAVF involved with several SAs, TAE with occluding one of SAs using a balloon is the useful method. (153 words)

緒言

脊髄の動静脈シャント疾患のうち、spinal dural arteriovenous fistula (SDAVF) は最も疾患頻度も高く病態についてもよく知られている一方、spinal epidural arteriovenous fistula (SEDAVF) は比較的稀な疾患である¹⁾。SEDAVFは動静脈シャントから硬膜外静脈叢に流入後、硬膜内への静脈の逆流による脊髄静脈

鬱滞やシャント血流による静脈叢の拡張による mass effect により myelopathy を起こし治療の対象となり^{2,3)}、直達手術や血管内治療、及び両者を組み合わせ治療が行われる。血管内治療では、静脈経由での病変部へのアクセスが困難な際は、n-butyl-2-cyanoacrylate(NBCA)や ONYX による経動脈塞栓術 (transarterial embolization: TAE) が選択される^{4,5,6)}。硬膜内逆流を合併した SEDAVF に対する TAE にて根治を目指すには、shunt point とそれと連続する venous pouch となった硬膜外静脈叢及び硬膜内に逆流する drainer に塞栓物質を十分に浸透させる必要がある。その際には塞栓物質の予期せぬ早期硬化や drainer への飛散を防止する目的で注入速度を control する必要がある。このためには、標的血管とした segmental artery (SA) から分岐する feeder に microcatheter を確実に wedge させることに加え、異なるレベルの SA から流入するシャント部への血流を遮断することが肝要である。今回、我々は硬膜内逆流を伴った SEDAVF に対し関与する 2 本の segmental artery のうちの 1 本をバルーンで閉塞し flow control 下に NBCA による TAE により治療した 1 例を報告すると共に、同法の有用性について考察する。

症例呈示

68 歳 男性

既往歴 糖尿病、慢性膀胱炎

現病歴 201X年4月より右下肢の脱力を自覚し、その後徐々に筋力低下が進行し歩行困難となった。5月中旬より背部痛が生じた。6月中旬に他院を受診し、腰仙部 magnetic resonance imaging (MRI)により脊髄動静脈のシャント疾患が疑われ、当科紹介となり入院となった。紹介時尿路感染の所見があり、残尿も大量であり排尿障害の合併も示唆された。

入院時神経学的所見 意識清明、脳神経及び両上肢に異常を認めず。下肢は左側では明らか筋力低下はないが、右側の筋力は腸腰筋や大腿四頭筋等の大腿部の筋力は manual muscle testing (MMT) 3/5、前脛骨筋や腓腹筋の下腿部の筋力は MMT 2/5 であった。両側下肢の表在感覚には明らかな左右差なく、右大腿外側から下腿外側を中心にしびれを認めた。尿閉の状態であり、溢流性尿失禁を認めた。Aminoff-Logue grade G4 M3、McCormick 分類は grade 3。

神経放射線学的所見 腰仙部 MRIで脊髄円錐近傍の脊髄の腫脹と Th11-12レベルの髄内の T2 high signalを認め、脊髄腹側に拡張蛇行した異常な静脈像を認めた (Fig. 1A,B)。Computed tomography angiographyでは明らかなシャント部位は同定しえなかった。

脊髄血管撮影 入院3日目、右大腿動脈に4French (Fr) シースを留置し、4Fr診断カテーテルにて脊髄血管造影

を行った。2本の segmental artery (SA) の関与が認められ、右第2、第3腰動脈(L2、L3)から分岐する radicular artery (RA) を feeder とし、右第3-4腰椎間の椎間孔付近にシャント部を認めた。シャント部から連続する venous pouch を形成する拡張した硬膜外静脈叢を認め、傍脊柱管部の硬膜外への順行性の静脈流出と emissary radicular vein から硬膜内に流入し radicular vein を介して perimedurally vein の逆流所見を認めた (Fig. 2A,B,3A)。上記所見より SEDAVF と診断し、経静脈的に病変部に到達するのは困難と予測され NBCA による TAE の方針とした。

血管内治療 入院4日目に全身麻酔下で治療を行った。グルカゴンを静脈投与し腸管蠕動を抑制した。病変部へは L2、L3 の2本の SA が関与していたが、L2 から分岐する feeder の方が microcatheter を wedge させた状態で NBCA を注入するのに相応しい血管径であり、病変部への NBCA の浸透の観察にも適していると考えた。NBCA 注入時に L3 からの feeder を balloon で閉塞し、シャント部の flow control する必要があると考えた。両側大腿動脈に 6French (Fr) シースを留置し、ヘパリン 3000 単位を投与して全身のヘパリン化を行い、以後 1000 単位/時を持続静注した。L2 に Heartrail II 6Fr JR4 (Terumo, Tokyo, Japan) 及び 4Fr Cerulean (Medikit, Tokyo, Japan) を同軸として留置し guiding catheter

とし、feederであるシャント部に向かう RA に Marathon (Covidien, Irvine, CA, USA) を留置した。L3 に Britetip 6Fr JR4 (Cordis, Miami, FL USA) を留置し、Scepter 4mm×10mm (Terumo) を RA 起始部手前に留置した (Fig. 3B)。Scepter の balloon を inflation して L3 からの feeder の血流を遮断した状態で、L2 からの撮影を行うと、L3 からの血流による laminar flow が消失していたことから、flow control し得たと判断した。37℃ に加温した NBCA とリピオドールを混合した 14% NBCA を調合し、L2 からの feeder に留置した Marathon から注入を開始した (Fig. 4A)。Shunt pouch に良好に penetration し、その後硬膜外に流出する vein にも NBCA が移行した時点 (Fig. 4B) で一旦数秒間 pause を置いた。注入を再開すると、硬膜内へ向かう vein にも逆流を始めた (Fig. 4C)。硬膜内には完全に NBCA は移行せず venous pouch が順調に充填され (Fig. 4D)、やがてシャント部より L3 からの feeder にも逆流所見があり再度注入を中止した (Fig. 4E)。数秒後注入を再開すると Marathon 留置部 reflux あり注入を終了した (Fig. 4F)。TAE 後の右 L2 及び L3 の動脈撮影で病変の消失が確認でき (Fig. 5A,B)、手技を終了した。

治療後経過 術後 14 日の脊髓血管撮影ではシャント血流の消失が確認でき、硬膜内の拡張蛇行した静脈も造影されなかった。排尿障害は改善せず自尿が得られず、自己

導尿が導入となった。右下肢の筋力は MMT4-/5 まで改善し、歩行練習が開始となった。術後 19 日に modified Rankin Scale (mRS) 3 の状態でリハビリテーション病院に転院となった。術後 3 か月後の時点では、杖なしで自力歩行可能な状態で排尿障害も改善傾向で導尿の頻度は減少し modified Rankin scale 2 の状態で、腰仙部 MRI で脊髄の腫脹は改善し髄内の T2 high signal 及び硬膜内の異常静脈像は消失していた (Fig. 6)。

考察

SEDAVF は、本邦での多施設共同研究で動静脈シャントから硬膜外静脈叢に流入後の drainer のパターンにより、intradural/perimedullary drainage (pMD)、paravertebral drainage (pVD)、combined perimedullary and paravertebral drainage (CD) の 3 群に分類され、59 例中 pMD 44 例、pVD 6 例、CD 9 例であった¹⁾。SEDAVF の過去の報告では、Huang らが 101 例³⁾、Takai²⁾ らが 45 例を drainer のパターンによる臨床的特徴について詳細に review している。Huang らは pVD が 73%、CD が 27% と報告し、病変が腰仙椎レベルでは前者が 38% (11 例)、後者が 62% (18 例) であるのに対し、頸椎レベルでは前者が 92% (50 例)、後者が 7% (4 例) で圧倒的に前者が多い傾向であったと報告している³⁾。Takai らは pMD 及び CD を Type A、pVD を Type B に分類している。診断時平均年齢、性別、

病変のレベルにおいて、前者は 63.5 歳で男性多く腰仙部に多く、後者は 34.3 歳で性差はなく頸胸椎に多い傾向であったと報告している²⁾。いずれの病型も myelopathy で発症するが、pMD は硬膜内への逆流による静脈鬱滞、pVD は流入するシャント血流による硬膜外静脈叢の著明な拡大による mass effect が原因であり、drainage パターンにより病態が異なるとされる²⁾。本例は CD に分類され、診断時年齢、性別、病変レベルといった点で上記の特徴と一致し、硬膜外静脈叢の拡張による venous pouch を形成していたが mass effect を呈する程ではなく、硬膜内逆流による静脈鬱滞が myelopathy の病因と考えられる。また Huang らの review では 10% (10 例) が出血で発症し、硬膜外血腫が 5% (5 例、2 例は頸椎、2 例は胸椎、1 例は腰仙椎レベル)、くも膜下出血は 5% (5 例、すべて頸椎レベル) とされ、出血性病変を合併することも念頭に置く必要がある³⁾。

SEDAVF の治療としては直達手術や血管内治療による治療の報告がある^{1,2,3,5,6,)}。Kiyosue らの SEAVF 45 例の review での治療成功率は、手術では 56% (16 例中 9 例)、血管内治療では 59% (29 例中 17 例) で AVF の消失が得られたとされている⁴⁾。Huang らの review では、初回治療での治療成功率は直達手術は 74% (31 例中 23 例)、血管内治療 55% (65 例中 36 例) で有意差は

ないものの前者が優れている傾向であった³⁾。血管内治療については TAE 及び TVE 両者の報告例がある^{1,4,6)}。TVE の適応については、病変部への大腿静脈から *ascending lumbar vein* 等を経由して病変に至るアクセスルートが確保されていることが前提となる。静脈経由でのアクセスルートがない場合は TAE しか治療手段はない。SEDAVF では直達手術は血管内治療と比較し高い治癒率である一方で椎弓切除の侵襲性や感染との合併症があり^{7,8,9)}、*first line* として血管内治療が行われる機会が増えており¹⁰⁾、治療手技の向上やデバイスの進化によりますますその傾向は加速化すると考える。SEDAVF の治療においても同様に血管内治療が *main stream* になっていくことに疑問の余地はないが、疾患頻度も少なく様々な治療手段の優劣については十分には議論されておらず治療戦略については確立しているとは言えない。また硬膜内逆流の有無、硬膜外への *drainer* の流出量の多寡、血管内治療における TAE 或いは TVE の選択等の様々な要因を検討する必要がある、個々の病態に応じ治療戦略を立てる必要がある。

本例では硬膜内逆流による *myelopathy* を伴った SEDA VF であり、経静脈的に病変部への到達は困難と予測されたため TAE での治療を選択し、塞栓物質としては液体塞栓物質の使用を考えた。ONYX は NBCA と比較し緩徐な硬化を示すことから浸透範囲を *control* しや

すい利点により、近年頭蓋内動静脈シャント疾患の治療でも頻用され適応が拡大している¹¹⁾。一方で脊髄シャント疾患のSDAVFのTAEでは長期成績の面でNBCAに対する劣位性を示す報告もある^{8,12,13)}。その点を考慮し我々は塞栓物質としてNBCAを選択し、遠く離れた硬膜内drainerまで確実に到達させるため、硬化速度を抑えるため14%の低濃度で使用した。

本例での治療成功の鍵は、NBCA注入において傍脊柱管部の硬膜外のdrainerへ飛散を最低限に抑え、硬膜内drainerから拡張しvenous pouchを形成した静脈叢及びシャント部までに確実に浸透させることである。そのためには標的血管からのNBCAの注入の際に浸透範囲や速度を良好にcontrolする目的で、シャント部での血流のflow controlが必須であった。本例ではL2、L3の2本のSAからのfeederが関与していたが、NBCAを注入する上で、L2の方が相応しい血管径で病変部へのNBCAの浸透の観察にも適していると考え、標的血管を選択した。NBCAの注入の際にMarathonを確実に標的血管にwedgeさせることはいうまでもなく、一時的にsingle, feeder, single drainerに近い血管構築にするためもう一方のL3からのfeederからの血流をballoonで遮断した。

Yamakawaら¹⁴⁾は複数のSAが関与するSDAVFに対し、TAEに際して標的血管以外のfeederからの血流を

balloon で遮断することで、feeder から shunt 及び drainer までの血管構造を単純化する工夫を報告した¹⁵⁾。本症例においても、既報と同様の方法を用いたが、feeder から比較的大きな venous pouch に抜ける SEDAVF では flow control による NBCA の早期硬化を防ぐことの重要性は更に大きいと考えた。これにより、venous pouch から距離のある perimedullary vein まで十分に NBCA が到達し得たと考えた。Yamakawa らの報告¹⁴⁾は single lumen 型の balloon を用いていたが、本例では double lumen タイプの Scepter を用いた。これにより標的血管からの TAE が不十分に終わった際に Scepter の wire lumen から追加の塞栓が行えると考えた。硬膜内逆流を伴った SEDAVF の TAE では、SDAVF と比較した場合、1) 塞栓物質の注入範囲がシャント部と drainer を介在する硬膜外静脈叢が含まれ広範囲である、2) 硬膜外への drainer への飛散を制御する必要がある、以上の 2 点より技術的により困難であり、この方法の導入が特に有用と考える。

この方法を行う上で注意すべき点として、balloon は塞栓物質の注入の標的血管となる小径の feeder への誘導は困難であり細径の feeder につながる手前のある程度の口径有した部分に留置する必要がある、留置位置については十分な検討を要し、解剖学的に血管構築が不向きな場合にはこの方法が行えない可能性もある。また標

的血管からのNBCAの注入の際、シャントポイントからもう一方のfeederのballoonを留置したSAからの分枝にNBCAが逆流した場合balloon catheterが接着されるriskがあり、balloon留置部位へ向かう逆流がないかを十分に観察する必要がある。

結語

2本のSAからのfeederが関与する硬膜内逆流を伴ったSEDAVFに対し、1本のfeederをballoonで閉塞しflow control下にNBCAによるTAEを行い、良好な治療結果を得た。SEDAVFのTAEでは、硬膜外へのdrainerへの飛散を可及的に減じ、かつシャント部とdrainerを介在する硬膜外静脈叢の存在により塞栓物質を広範囲に浸透させる必要がある、シャント血流を良好にcontrolできる同法が有用と考えられた。

利益相反の開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献

1) Kiyosue H, Matsumaru Y, Niimi Y, et al: Angiographic and Clinical Characteristics of Thoracolumbar Spinal Epidural and Dural Arteriovenous Fistulas. Stroke 2017; 48: 3215-3222.

2) Takai K, Taniguchi M: Comparative analysis of spinal extradural arteriovenous fistulas with or

without intradural venous drainage: a systematic literature review. *Neurosurg Focus* 2012; 32: E8.

3) Huang W, Gross BA, Du R: Spinal extradural arteriovenous fistulas: clinical article. *J Neurosurg Spine* 2013; 19: 582-590.

4) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, et al: Spinal ventral epidural arteriovenous fistulas of the lumbar spine: angioarchitecture and endovascular treatment. *Neuroradiology* 2013; 55: 327-336.

5) Ramanathan D, Levitt MR, Sekhar LN, et al: Management of spinal epidural arteriovenous fistulas: interventional techniques and results. *J Neurointerv Surg* 2014; 6: 144-149.

6) Rangel-Castilla L, Holman PJ, Krishna C, et al: Spinal extradural arteriovenous fistulas: a clinical and radiological description of different types and their novel treatment with Onyx. *J Neurosurg Spine* 2011; 15: 541-549.

7) Koch MJ, Stapleton CJ, Agarwalla PK, et al: Open and endovascular treatment of spinal dural arteriovenous fistulas: a 10-year experience. *J Neurosurg Spine* 2017; 26: 519-523.

8) Gokhale S, Khan SA, McDonagh DL, et al: Comparison of surgical and endovascular approach in management of spinal dural arteriovenous fistulas: A single center experience of 27 patients. *Surg Neurol Int* 2014; 5: 7. eCollection 2014.

9) Su IC, TerBrugge KG, Willinsky RA, et al: Factors determining the success of endovascular treatments among patients with spinal dural arteriovenous fistulas. *Neuroradiology* 2013; 55: 1389-1395.

10) Brown PA, Zomorodi AR, Gonzalez LF: Endovascular management of spinal dural arteriovenous fistulas. *Handb Clin Neurol* 2017; 143: 199-213.

11) Chandra RV, Leslie-Mazwi TM, Mehta BP, et al: Transarterial onyx embolization of cranial dural

arteriovenous fistulas: long-term follow-up. AJNR Am J Neuroradiol 2014; 35: 1793-1797.

12) Adamczyk P, Amar AP, Mack WJ, et al: Recurrence of "cured" dural arteriovenous fistulas after Onyx embolization. Neurosurg Focus 2012; 32: E12.

13) Blackburn SL, Kadkhodayan Y, Ray WZ, et al: Onyx is associated with poor venous penetration in the treatment of spinal dural arteriovenous fistulas. J Neurointerv Surg 2014; 6: 536-540.

14) Yamakawa A, Fujita A, Tanaka J, et al: Transarterial Embolization for Spinal Dural Arteriovenous Fistula Assisted by a Balloon Placed at a Different Level of a Segmental Artery: A Case Report. JNET J Neuroendovasc Ther 2018; 12: 199-205.

図表の説明

Figure 1

T2-weighted sagittal (A) and coronal (B) MR images on admission show spinal cord swelling (black arrow

heads) with a high intensity lesion (white arrow) in the spinal cord around the conus, and the tortuous dilated perimedullary vein (white arrow heads).

Figure 2

Preoperative right L2 (A) and L2 (B) lumbar artery angiogram show the feeder from L2 (black arrow), the shunt point (asterisk), the venous pouch formed by dilation of the extradural venous plexus (black arrow heads), the intradural drainer (white arrow), and the extradural drainer (white arrow heads).

Figure 3

Schematic illustration of the vascular architecture without (A) and with devices (B).

1:feeder from L2, 2:feeder from L3, 3:shunt point, 4:venous pouch 5: intradural drainer, 6: extradural drainer, 7: microcatheter (Marathon), 8: balloon catheter (Scepter)

Figure 4

14% NBCA was infused via the microcatheter placed at the feeder from L2 under the flow control by occluding L3 using a balloon (A). NBCA penetrated the venous

pouch through the shunt point and proceeded to the extradural drainer (B). After short-interval interruption of infusion, NBCA reached to the outlet of the intradural drainer (black arrow) (C). Then, NBCA penetrated the venous pouch steadily (D) and flowed back into the feeder from L3 (black arrow head) (E). Finally, reflux into the feeder from L2 (white arrow) was shown (F).

Figure 5

Postoperative right L2 (A) and L3 (B) lumbar artery angiogram show disappearance of the AVF. Black arrow heads indicate the cast of NBCA.

Figure 6

T2-weighted sagittal (A) and coronal (B) MR images three months after TAE show improvement of spinal cord swelling, and disappearance of the high intensity lesion in the spinal cord and the abnormal intradural vein.

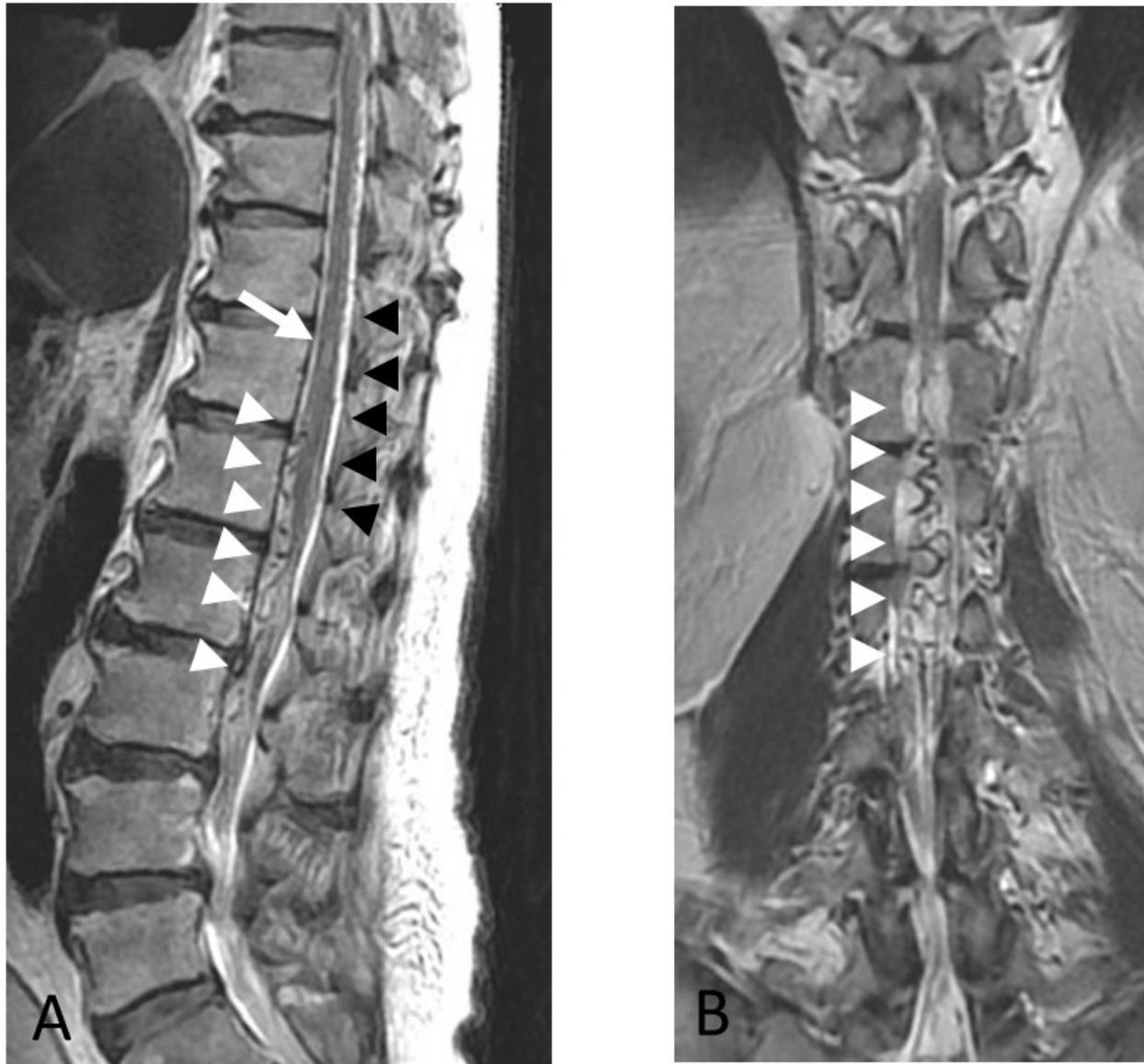


Fig.1

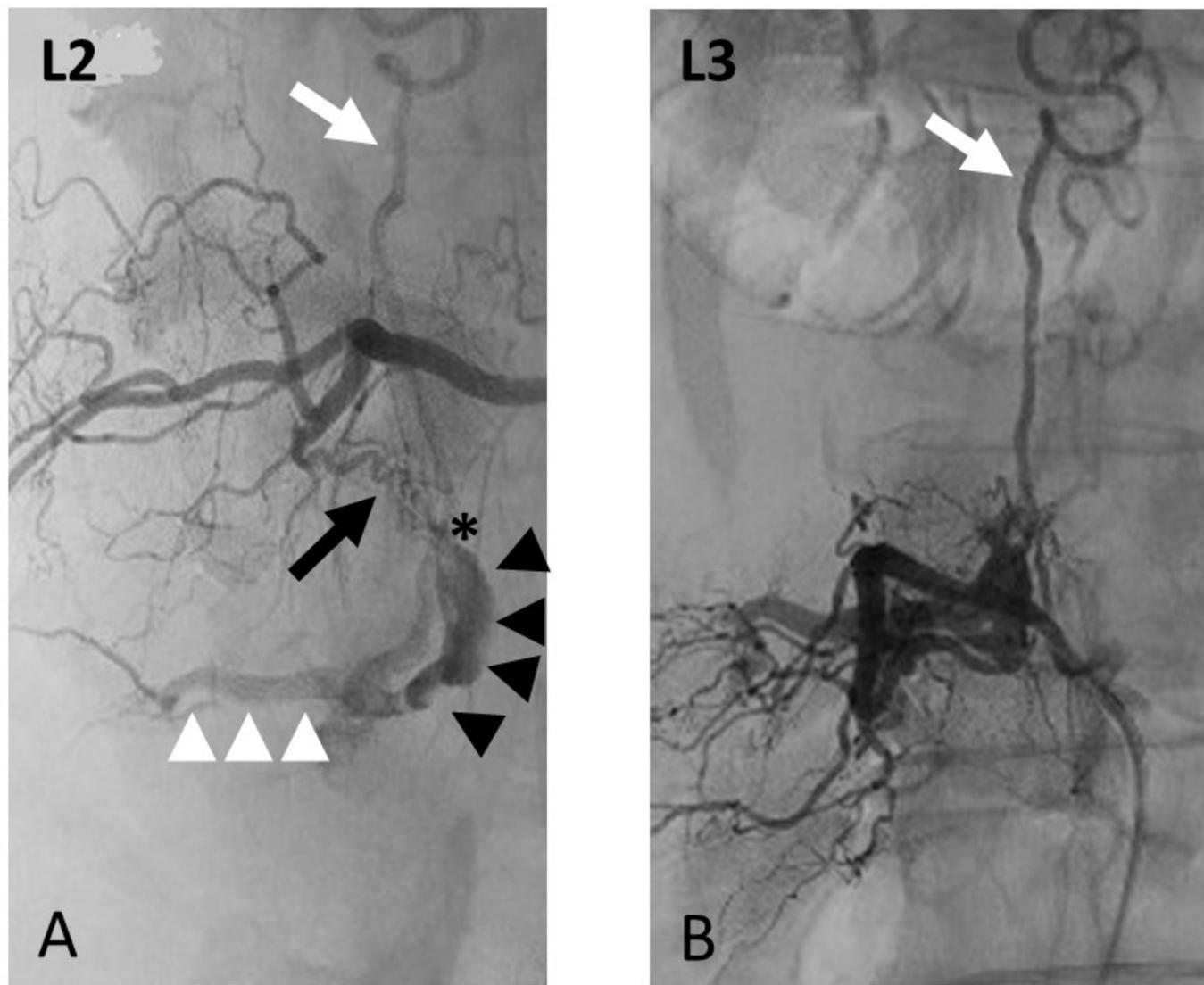


Fig.2

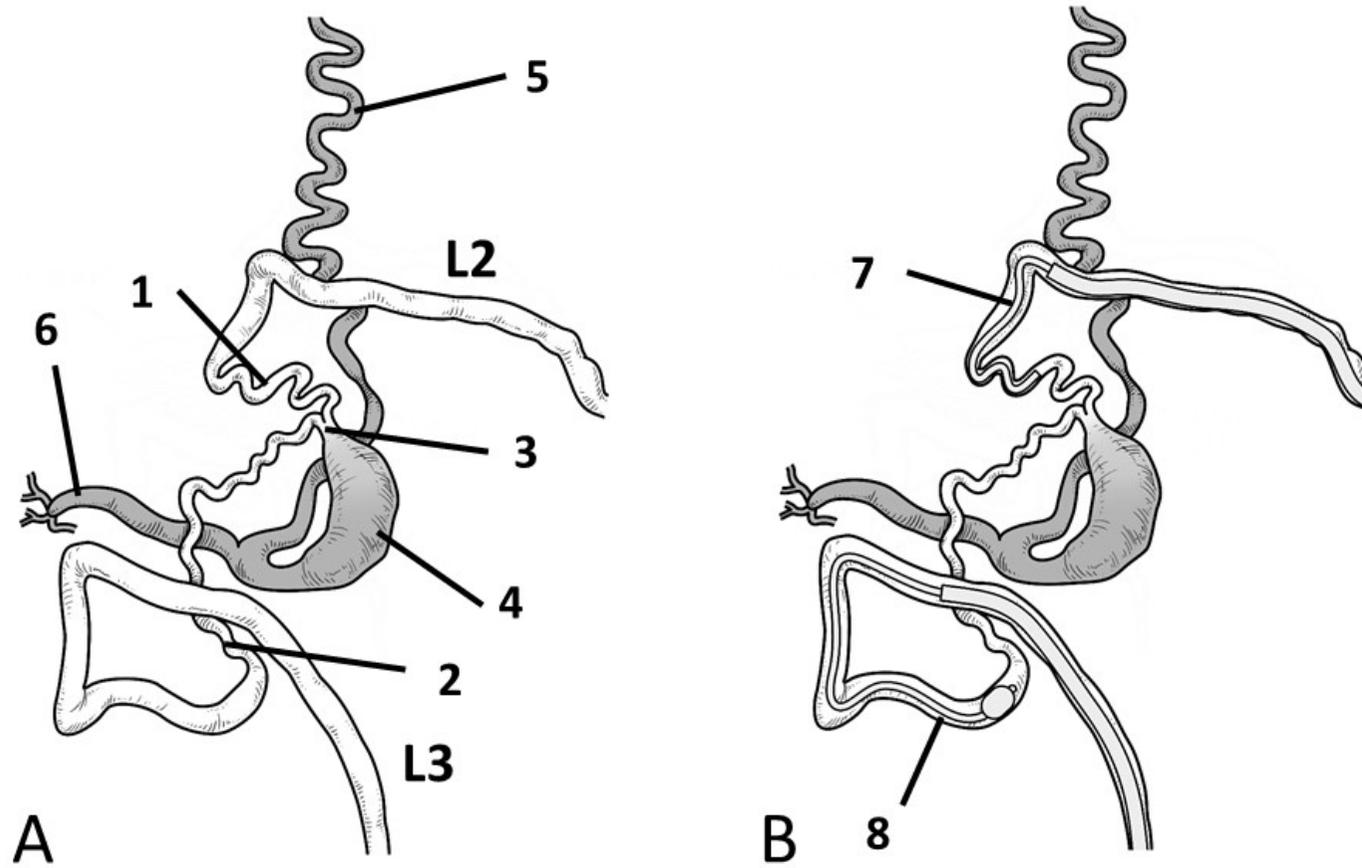


Fig.3

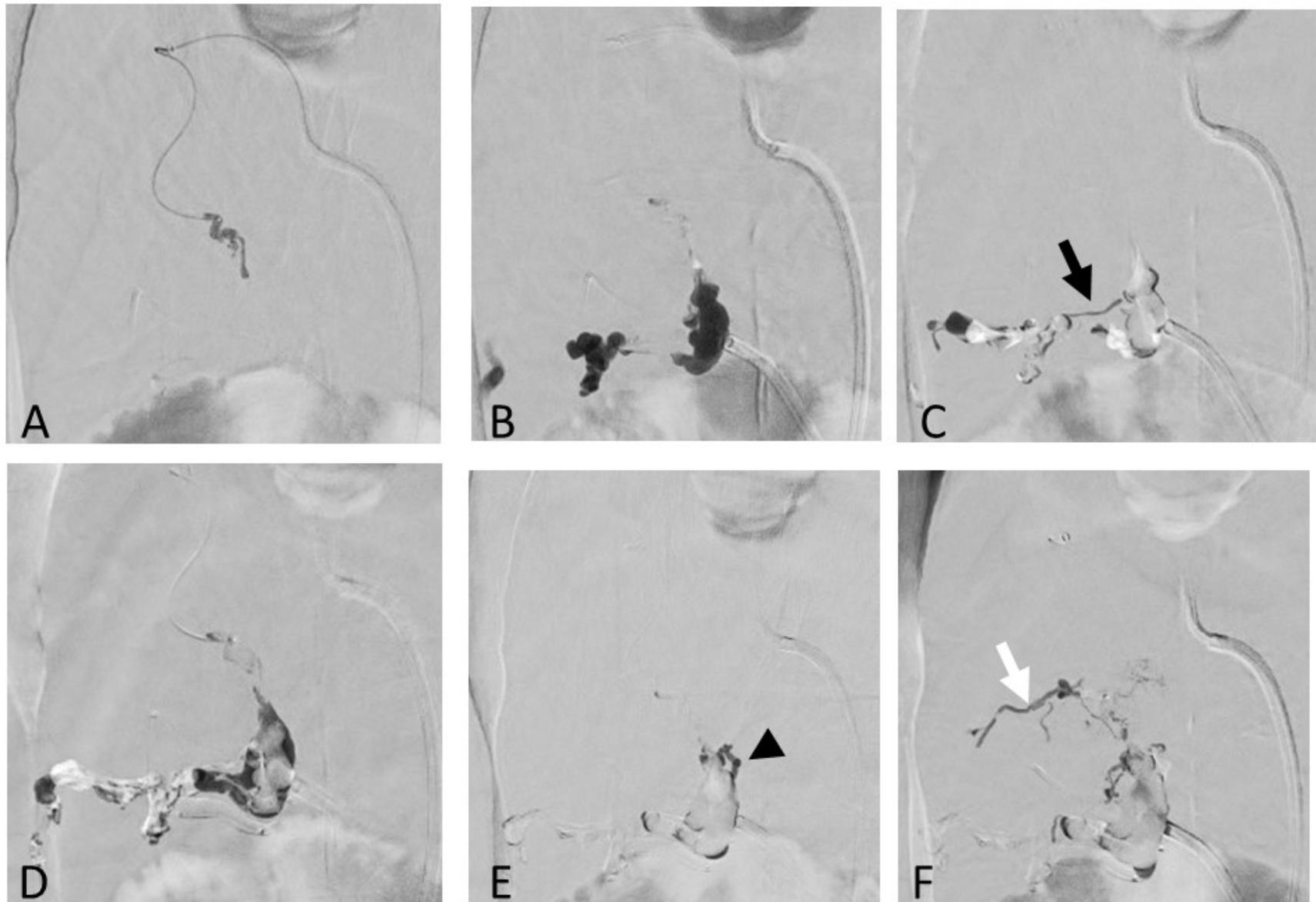


Fig.4

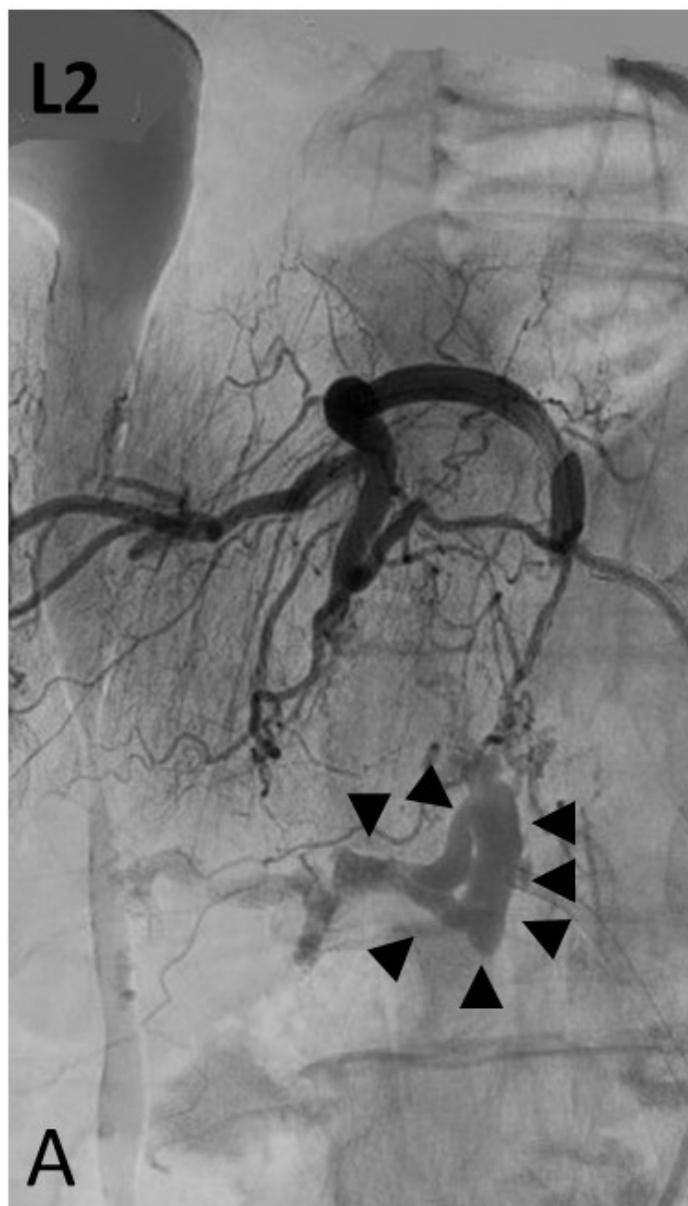


Fig.5

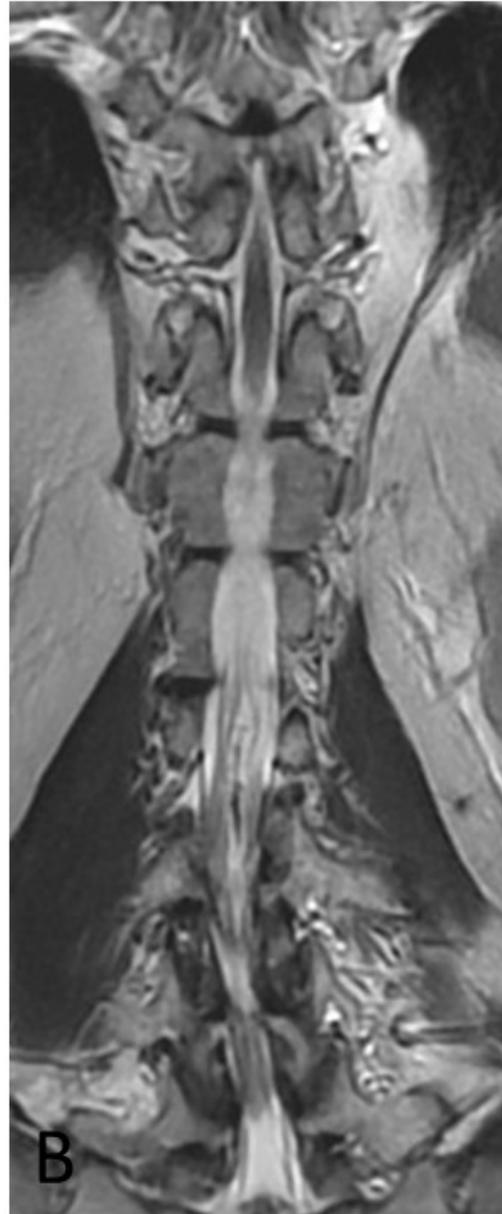


Fig.6