

テクニカルノート

Main feeder をバルーンで一時遮断し、細径の標的動脈から根治的 Onyx 塞栓術を施行し得た小脳テント部硬膜動静脈瘻の 1 例

小倉良介^{1,2)}、長谷川仁¹⁾、熊谷駿介²⁾、高橋陽彦^{1,2)}、藤原秀元²⁾、吉村淳一^{1,2)}、藤井幸彦¹⁾

1) 新潟大学脳研究所 脳神経外科

2) 長野赤十字病院 脳神経外科

筆頭演者（筆頭著者）の連絡先

小倉良介

〒950-8585

新潟市中央区旭町通 1-757

新潟大学脳研究所 脳神経外科

電話 025-227-0653

FAX 025-227-0819

E-mail oguryou@bri.niigata-u.ac.jp

Key Words: Tentorial dural arteriovenous fistula, torcular, Onyx, balloon catheter, DeFrictor

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】 Multiple feeders を有する小脳テント部硬膜動静脈瘻に対する根治的 Onyx 塞栓術の 1 例を報告する。

【症例】 66 歳、男性。Main feeder は両側後頭動脈 (OA)、静脈洞交会左の小脳テントに fistula point を有し、主に上小脳虫部静脈から直静脈洞に流出していた。両側中硬膜動脈 (MMA) から、細径だが同部へ shunt を認めた。両側 OA をバルーンで一時遮断することで、両側 MMA から Onyx を fistula point に浸透させやすくする工夫により、根治的塞栓が行えた。

【結論】 Main feeder をバルーンで一時遮断し、細径の標的血管から Onyx 塞栓術を行う方法は有用である。

【緒言】

Tentorial dural arteriovenous fistula (TdAVF) は、発生頻度は稀であるが、出血発症の多い aggressive feature を呈するため、積極的な治療介入が求められる¹⁾。TdAVF は、sinus を介さずに直接皮質静脈に逆流する non sinus fistula であることが多いため、経静脈的塞栓術 (transvenous embolization: TVE) が選択されることは少なく、n-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) や Onyx を用いた経動脈的塞栓術 (transarterial embolization: TAE) や直達手術、放射線治療を組み合わせた治療が行われる。今回、multiple feeders を有する TdAVF に対して、標的血管以外の high flow feeder を balloon catheter で一時遮断し、Onyx による根治的塞栓術を行った 1 例を経験したので報告する。

【症例呈示】

症例：66歳男性

既往歴：多発性骨髄腫（Stage II）

現病歴：当院血液内科で多発性骨髄腫の維持療法中に、頭蓋内精査目的に施行された頭部MRIで硬膜動静脈瘻が疑われ当科紹介となった。

初診時身体所見：意識清明、頭痛や耳鳴などの自覚症状を含め、明らかな神経症状を認めなかった。

画像所見：頭部MRIでは、脳実質に明らかな異常所見を認めなかったが、小脳上面に多数のflow voidを認め、superior vermian vein (SVV)の拡張を認めた (Fig. 1A)。MRAでは、両側 occipital artery (OA)末梢のtransosseous branchが発達し、拡張したSVVおよびstraight sinusの描出を認めた。脳血管撮影では、両側 middle meningeal arteryのposterior convexity branch (MMA PCB)、両側 OA、右 posterior meningeal artery (PMA)、左 superior cerebellar artery (SCA)の硬膜枝、左 tentorial arteryがfeederとなり、confluence 左の小脳テントにfistula pointを有し、主にvenous pouchを伴った2本の不整に拡張したSVVからstraight sinusに流出するstraight sinus typeのTdAVFと診断した (Fig. 1B, Fig. 2A-F)。Drainerは、SVV以外に、inferior vermian veinから左 lateral mesencephalic veinを介してbasal vein of Rosenthal (BVR)、小脳上面のcortical veinから右 petrosal veinを介して右 superior petrosal sinusへ流出する経路が認められた (Fig. 1C, D)。無症候であったが、脳表静脈に逆流および流出静脈の拡張像を認めており、出血リスクが高いと判断し治療適応とした。

治療経過：Non sinus fistulaであり、両側 MMA PCBからOnyxを用いた

TAEを計画した。Onyxがfistula pointへ浸透しやすくなるように、両側OAをバルーンで一時遮断することとした。全身麻酔下に、両側大腿動脈に6Fr long sheathを留置し、全身へパリン化を行った。6Fr Road Master 90cm（グッドマン、愛知）を両側外頸動脈へ誘導し、続いて両側OAにScepter C 4mm×10mm（Terumo、東京）をASAHI CHIKAI14（朝日インテック、愛知）で誘導し、それぞれ拡張させてOAを遮断した（Fig. 3A,B）。DeFrictor Nano Catheter（メディコスヒラタ）をASAHI CHIKAI10および同008（朝日インテック）に追従させ、右MMA PCBの末梢まで誘導した（Fig. 3C,D）。Onyx18（Covidien, Minnesota, USA）を用いて、plug & push法にてTAEを開始した。Confluence周囲のfistula pointと考えられる部分の近傍にOnyxが進んだが、同pointを越えてSVVまでは浸透しなかった。また、右横静脈洞-S状静脈洞近傍にOnyxが浸透し、静脈洞への流出を疑ったが、適宜撮影を行い静脈洞本幹ではなく、近傍の拡張した静脈であると判断した（Fig. 3E,F）。Onyx 2.03ml注入した時点で右側からの塞栓を終了した。DeFrictorは、問題なく抜去できた。より確実なfistula pointの閉塞を期待し、左MMAへDeFrictorをASAHI CHIKAI10でアクセスし、左MMA PCB末梢へ誘導した（Fig. 4A,B）。やはりplug & push法にてOnyx18を注入した。Plug形成に時間を要したが、fistula pointを越えてdraining veinまでOnyxが浸透した。罹患静脈であるSVVへある程度Onyxが充填された時点で、明らかな動静脈シャントは消失した。左側からはOnyx 2.83ml注入し塞栓を終了した（Fig. 4C,D）。Onyxは合計4.86ml使用した。DeFrictorを抜去し、両側OAのバルーン遮断を解除、抜去したのち、確認造影を行った。左右外頸動脈、内頸動脈および右椎骨動脈撮影のいずれにおいても明らかな動静脈シャントを認めず、脳

血管撮影上の根治と考えた (Fig. 4E, F)。また、静脈洞への Onyx 流出は認めなかった。治療中に、明らかな vital sign の変動は認めなかった。術後新たな神経症状はなく、頭部 MRI でも明らかな新規梗塞の出現なく、経過良好で第 6 病日に当科退院した。治療後 3 ヶ月の時点で、神経症状の出現や頭部 MRI/MRA では再発を認めない。

【考察】

TdAVF の灌流パターンは、もともと tentorial sinus がテント上下から静脈灌流を受けていることを反映し、症例により多彩である。Lawton らは外科的アプローチの観点から、シャント部位 (midline, paramedian, lateral) と関連する静脈洞および流出静脈 (infratentorial, supratentorial) に注目し、TdAVF を 6 群 (type I: galenic、type II: straight sinus、type III: torcular、type IV: tentorial sinus、type V: superior petrosal sinus、type VI: incisura) に分類している²⁾。本例は multiple feeders であったが、いずれも confluence 左に集簇しており、同部が fistula point と考えた。一方で流出路は infratentorial が主体であったため、Lawton らの分類では straight sinus type と診断した。また、本例の drainer は、2 本の SVV から straight sinus へ流出する以外に、inferior vermian vein から左 lateral mesencephalic vein を介して basal vein of Rosenthal へ、小脳表面の cortical vein から右 petrosal vein を介して右 SPS へ流出する複数のルートを有しており、静脈灌流が一箇所に集中しなかったことが、無症候で経過した一因であると思われた。無症候であったが、

TdAVF は、aggressive behavior をたどることが多く、積極的な治療介入を行うこととした。

TdAVF の根治的治療は、non sinus fistula が多いため TVE ではなく、TAE や直達手術、放射線を組み合わせた治療が行われる。直達手術は侵襲が大きいため第一選択になりづらく、放射線治療は効果が得られるまで 1-2 年の時間がかかる問題がある。診断画像の進歩により複雑な血管構築や血行動態の理解が可能になったこと、デバイスの発展により、TdAVF に対する根治的治療として TAE への期待が高まっている³⁾。塞栓物質としては、NBCA の場合、flow の遅い MMA からでは proximal ligation に終わる可能性が高く、また濃度のコントロールも熟練を要し、TAE 単独での根治は難しいとされている⁴⁾。一方、Onyx は非接着性の析出型液体塞栓物質で、長時間の間欠的注入が可能で、塞栓範囲をコントロールし易く、TdAVF に対する TAE は、良好な治療成績が報告されている^{5,6)}。TAE での根治を目指すためには、fistula point を含めた罹患静脈まで Onyx を浸透させる必要がある。そのためには、適切な標的血管の選択、圧勾配を意識した Onyx の注入が重要である。標的血管としては、円蓋部の MMA は危険な吻合がなく、比較的長く直線的に走行し、蛇行が少なく、fistula point 近傍までアプローチしやすいため、MMA が選択されることが多い⁷⁾。本例では、脳血管撮影所見から、両側 OA、両側 MMA が標的血管候補と考えた。OA は、MMA よりも太く、high flow feeder であったが、OA から塞栓した場合、『後頭部の皮膚壊死』や、『末梢部の屈曲・蛇行が強く、fistula point 近傍までマイクロカテーテルを誘導できずに不完全塞栓となる可能性』、『高度な屈曲・蛇行による、カテーテル抜去困難の恐れ』、『dangerous anastomosis を介した予期せぬ血管への迷入による神経障

害のリスク』があり、MMA PCBを標的血管として選択した。ただし、MMA PCBの末梢部は極めて細径のため、fistula point近傍までカテーテルを誘導することが困難と思われた。そこで、DMSO対応マイクロカテーテルの中でも先端外径が最も細いDeFrictor（先端外径1.3Fr）を使用した。Guide wireは、DeFrictorを可能な限りfistula point近くまで誘導するため、MMA近位部では0.010 inchを使用し、MMA PCBに誘導したところで0.008inchに交換する工夫を行った。

Arteriovenous malformation (AVM)やAVFに対するballoon catheterを併用したTAEは、以前から用いられることの多い手技で、これまでも多くの報告がある。Gotoらは、AVMに対するNBCAを用いたTAEの際に、nidusのflow controlを行う方法として、main feederのproximalや、他のfeederをballoon catheterで一時遮断することを提案した⁸⁾。Shiらは、AVFに対するOnyx塞栓の際に、balloon catheterをproximalにおいてflow controlすることで、plug形成および注入範囲の調整がしやすくなることを報告した⁹⁾。Kotsugiらは、両側外頸動脈の分枝が複数関与する上矢状静脈洞部のdAVFに対し、両側外頸動脈の起始部を6Fr balloon guiding catheterで遮断しながら、MMAからshunt point近傍に誘導したマイクロカテーテルからNBCAを注入し完全塞栓を行なった1例を報告した¹⁰⁾。我々の症例は、外頸動脈系以外にもSCAやPMA, tentorial arteryなどが関与していたこと、target feederである両側MMAが非常に細径であったため、shunt point近傍までマイクロカテーテルを誘導できず、NBCAでの塞栓は近位閉塞になってしまう可能性を考え、浸透性のよいOnyxによるTAEを行った。外頸動脈を閉塞せずに、OAを選択的にバルーンで閉塞したことで、Onyx塞栓の途中で適宜同側または対

側の guiding catheter から撮影を行うことができ、塞栓状況や静脈洞閉塞の有無を適宜確認できる利点もあった。しかしながら、balloon catheter による比較的近位での遮断のため、OA 以外の feeder や、OA-VA 吻合を介した血流が残るため、fistula point の完全な血流遮断はできないことを念頭に置きながら塞栓術を行うことが重要である。

本例では、右 MMA および左 MMA からの TAE により完全閉塞を得ることができたが、2セッション必要となった理由として、前述の如く十分な flow control ができていなかった可能性がある。その他、MMA は比較的直線的な走行であったが、非常に細径であり、low-profile のマイクロカテーテルを選択したにも関わらず fistula point まで誘導できずに、比較的遠位からの Onyx 塞栓となったこと。また、右 MMA からある程度 Onyx 塞栓が得られた段階で、両側 OA をバルーンで閉塞したまま左外頸動脈撮影を行い、左 MMA からも fistula および罹患静脈が確認できたため、右 MMA からのみの塞栓に固執せず、左 MMA からの塞栓に変更したことが 2セッション必要となった原因と考える。

Onyx の合併症は、ethylene vinyl alcohol (EVOH) copolymer の溶解液である dimethyl sulfoxide (DMSO) による血管痛があること、plug and push 法により緩徐に注入する必要があるため治療が長時間にわたり、それに関連する被爆の増加、逆流範囲が長くなるとカテーテル抜去困難の危険があること、NBCA に比べ接着性がないため dangerous anastomosis への迷入や high flow fistula に注入すると静脈側に migration してしまふことが挙げられる¹¹⁾。さらに、multiple feeders の場合、high flow feeder が残っていると、Onyx のコントロールが困難となり、正常静脈洞など予期せぬ血管への迷入リスクや、圧勾配により目的部位まで十分に

Onyx を浸透させることが困難な問題点がある。今回、バルーンを用いて発達した feeder である両側 OA の血流を一時遮断したことで、Onyx のコントロールが容易となり、正常静脈への飛散を防ぎ、fistula point を越えて罹患静脈まで Onyx を十分に浸透させることができた。また、balloon での一時的な閉塞であるため、OA を塞栓する場合と比較し、OA 塞栓に伴うリスクが低減し、安全性の高い方法であることが示唆された (Fig. 5)。ただし、長期的な塞栓効果については、引き続き慎重に経過をみる必要がある。

【結語】

dAVF に対する Onyx の使用が保険償還されたこともあり、TdAVF に対する Onyx 塞栓術の機会は増えることが想定される。根治的な Onyx 塞栓術を安全に遂行するためには、術前に十分な血管解剖および血流評価を行い、治療戦略をたてることが重要である。Multiple feeders を有する TdAVF に対して、標的血管が細径であっても、別の high flow な main feeder をバルーンで一時遮断することで有効な Onyx 塞栓術を行うことが可能となる。

なお、本論文の投稿にあたり、患者自身に説明同意を得て、「症例報告を含む医学論文および学会発表における患者プライバシー保護に関する指針」を遵守した。

【利益相反の開示】

筆頭著者および共著者に利益相反はない。

【文献】

- 1) Chaichana KL, Coon AL, Tamargo RJ, et al. Dural arteriovenous fistulas: epidemiology and clinical presentation. *Neurosurg Clin N Am.* 2012; 23:7-13.
- 2) Lawton MT, Sanchez-Mejia RO, Pham D, et al. Tentorial dural arteriovenous fistulae: Operative strategies and microsurgical results for six types. *Neurosurgery* 2008; 62(3 Suppl 1): 110-125.
- 3) Puffer RC, Daniels DJ, Kallmes DF et al. Curative onyx embolization of tentorial dural arteriovenous fistulas. *Neurosurg Focus* 2012; 32: E4.
- 4) Rabinov JD, Yoo AJ, Ogilvy CS, et al. ONYX versus n-BCA for embolization of cranial dural arteriovenous fistulas. *J Neurointerv Surg* 2013; 5: 306-310.
- 5) Cannizzaro D, Brinjikji W, Rammos S, et al. Changing clinical and therapeutic trends in tentorial dural arteriovenous fistulas: A systematic review. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2015; 36:1905-1911.
- 6) Huang Q, Xu Y, Hong B, Li Q et al: Use of onyx in the management of tentorial dural arteriovenous fistulae. *Neurosurgery.* 2009;65: 287-293.
- 7) Griessenauer CJ, He J, Salem M, et al. Middle meningeal artery: gateway for effective transarterial Onyx embolization of dural arteriovenous fistulas. *Clin Anat.* 2016; 29:718-728.
- 8) Goto K, Uda K, Ogata N. Embolization of cerebral arteriovenous

malformations (AVMs)-material selection, improved technique, and tactics in the initial therapy of cerebral AVMs. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 1998; 38 Suppl: 193-199.

9) Shi ZS, Loh Y, Gonzalez N, et al. Flow control techniques for Onyx embolization of intracranial dural arteriovenous fistulae. *J Neurointerv Surg*. 2013; 5:311-316.

10) Kotsugi M, Nakagawa I, Takamura Y, et al. Transarterial embolization of dural arteriovenous fistula in superior sagittal sinus under bilateral external carotid artery flow control: Technical note. *World Neurosurg*. Available online 8 July 2019. [Epub ahead of print]

11) Wang H, Lv X, Jiang C, et al: Onyx migration in the endovascular management of intracranial dural arteriovenous fistulas. *Interv Neuroradiol*. 2009; 15:301-308.

【図表の説明】

Figure 1

T2-weighted image (A) showed markedly enlarged cerebellar veins and two superior vermian veins (white asterisk). Fused 3D-DSA (B) showed a tentorial arteriovenous fistula, mainly fed by the bilateral middle meningeal arteries and bilateral occipital arteries with the fistula point at the torcular (double white asterisks), draining into two superior vermian veins. Fused 3D CTA and venography (C and D) showed the venous drainage into the

two superior vermian veins, the inferior vermian vein (double black asterisks) and markedly dilated cerebellar veins (white arrow).

Figure 2

DSA anteroposterior (A) and lateral (B) projections of the right external carotid artery (ECA) and anteroposterior (C) and lateral projections (D) of the left ECA showed tentorial dural arteriovenous fistula supplied by the bilateral middle meningeal arteries (black arrow) and the bilateral occipital arteries (white arrow). DSA lateral projection of the right vertebral artery (E) and lateral projection of the left internal carotid artery (F) showed the feeders from the right posterior meningeal artery (black arrowhead), the tentorial branch of superior cerebellar artery (white arrowhead) and the left tentorial artery (asterisk).

Figure 3

The anteroposterior (A) and lateral view (B) of craniogram, showing balloon catheters placed and inflated at the bilateral occipital arteries (black arrow). Anteroposterior (C) and lateral (D) views of the right middle meningeal artery angiography showed the fistula point and the draining veins. Anteroposterior (E) and lateral (F) views of craniogram showing that Onyx did not penetrate the venous pouch through the fistula point and proceeded to the

extradural drainer (white arrow).

Figure 4

Anteroposterior (A) and lateral (B) views of the left middle meningeal artery (MMA) angiography showed the fistula point and the draining veins. Anteroposterior (C) and lateral (D) views of craniogram illustrate that Onyx penetrated the venous pouch through the fistula point (black arrow) and proceeded to the extradural drainer. Lateral projections of the right external carotid artery (ECA) (E) and the left ECA (F) angiographies demonstrated disappearance of the tentorial dural arteriovenous fistula after balloon deflation.

Figure 5

The scheme of a dural arteriovenous fistula with low and high flow feeders (A). Onyx embolization via low flow feeder without balloon occlusion (B). Onyx cast is carried away or fragmented by blood flow from the high flow feeder. Onyx embolization via low flow feeder with balloon occlusion (C-E). Onyx penetrated the drainer through the fistula point under flow control by occluding the high flow feeder using a balloon (D). Complete obliteration was achieved after balloon deflation (E).

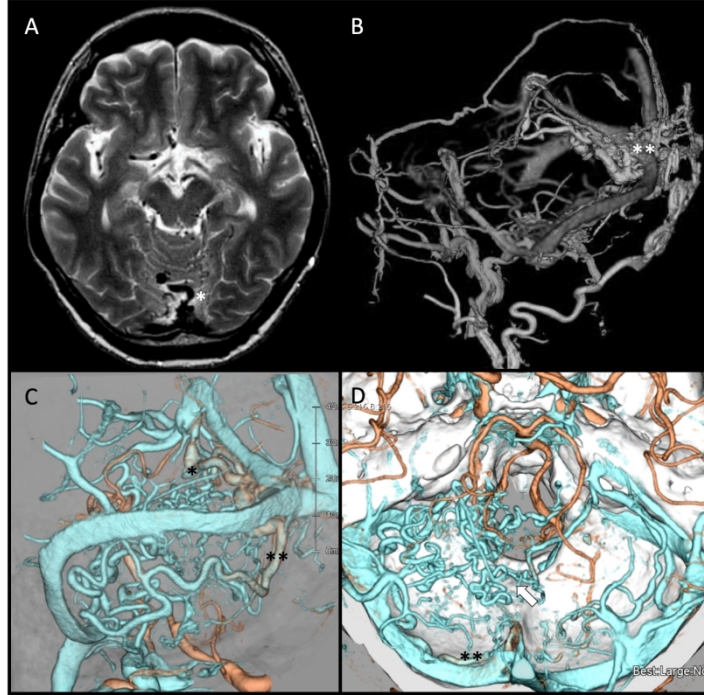


Fig1.

1057x793mm (72 x 72 DPI)

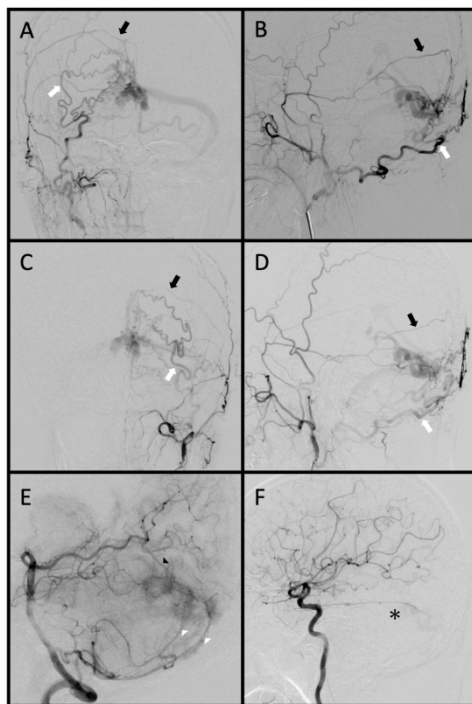


Fig2.

1057x793mm (72 x 72 DPI)

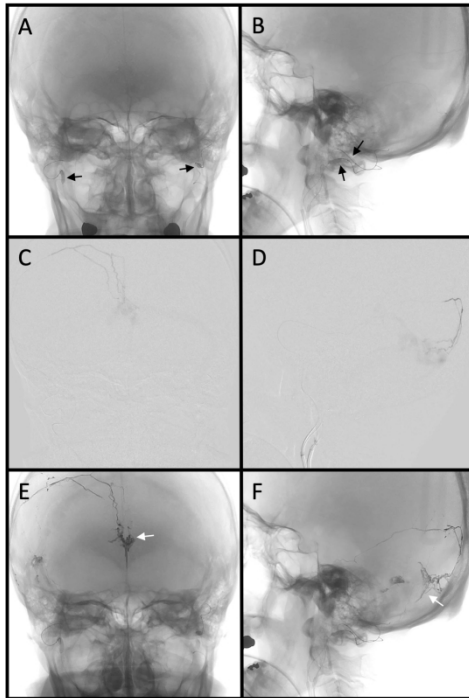


Fig3.

1057x793mm (72 x 72 DPI)

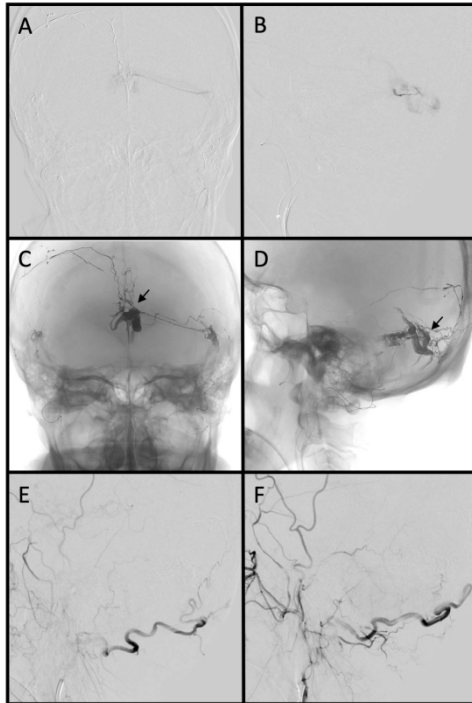


Fig4.

1057x793mm (72 x 72 DPI)

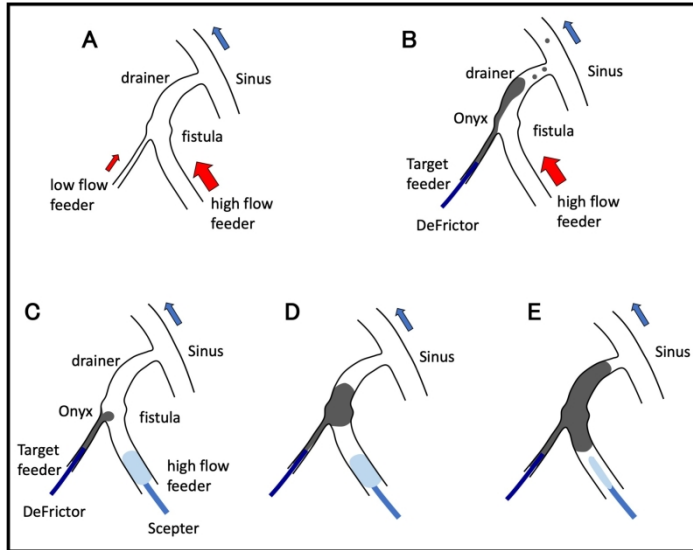


Fig5.

1057x793mm (72 x 72 DPI)