

## 症例報告

### 経動脈的アプローチによる静脈洞コイル塞栓術が有用であった硬膜動静脈瘻の 2例

島田健司<sup>1</sup>、佐藤浩一<sup>2</sup>、手島奈津実<sup>2</sup>、山口泉<sup>1</sup>、宮本健志<sup>1</sup>、曾我部周<sup>1</sup>、三宅一央<sup>1</sup>、倉敷佳孝<sup>2</sup>、花岡真実<sup>2</sup>、兼松康久<sup>1</sup>、松崎和仁<sup>2</sup>、高木康志<sup>1</sup>

<sup>1)</sup>徳島大学脳神経外科

<sup>2)</sup>徳島赤十字病院脳神経外科

#### 連絡先

島田健司、徳島大学脳神経外科

〒770-8503 徳島県徳島市蔵本町 2-50-1 TEL 088-633-7149

s\_kenji1032@yahoo.co.jp

**Key words:** dural arteriovenous fistula, transarterial sinus coiling, accessory meningeal artery, middle meningeal artery

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：経静脈的に到達困難であった硬膜動静脈瘻に対して、経動脈的に瘻孔を通過し、罹患静脈洞のコイル塞栓が可能であった2例を経験したので報告する。症例：82歳男性。横静脈洞部硬膜動静脈瘻で、マイクロカテーテルは流入動脈である中硬膜動脈を介して瘻孔を通過し、isolateされた罹患静脈洞へ到達し、コイル塞栓により動静脈瘻は消失した。79歳男性。海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻で、マイクロカテーテルは流入動脈である副硬膜動脈を介して瘻孔を通過し、海綿静脈洞へ到達し、コイル塞栓により動静脈瘻は消失した。結論：経動脈的罹患静脈洞塞栓術は経静脈的アプローチが困難な症例に対して有用な治療選択肢の1つと考えられた。

## 緒言

硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula: DAVF) に対する治療は経静脈的塞栓術 (transvenous embolization: TVE) が主流であるが、TVEで根治困難な症例に対して Onyx (Medtronic, Minnesota, USA) を用いた経動脈的塞栓術 (transarterial embolization: TAE) による治療症例が増加している。Onyx を用いた TAE が本邦でも保険適用となったが、頭蓋内動脈や神経栄養血管への迷入の危険もあり、特に海綿静脈洞部や舌下神経管近傍、頭蓋頸椎移行部や脊髓の DAVF には使用すべきではない。また Onyx が瘻孔を超えて drainer に到達せず、feeder occlusion となって根治に至らないこともある。今回我々は経動脈的に瘻孔を通過して罹患静脈洞へ到達し、コイル塞栓により根治した DAVF の2症例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症例呈示

症例 1：82 歳男性。

主訴：拍動性耳鳴り、失語、動揺感。

既往歴：高血圧、高脂血症

現病歴：1 年前より耳鳴り、言葉がでにくいという症状があり、最近歩行時の動揺感が強いとのことで近医を受診した。頭部 MRI を撮像したところ DAVF が疑われ、精査加療目的で当科紹介となった。

検査所見：MRA では左横静脈洞に異常血流信号があり、脳血管撮影検査で isolated left transverse sinus (TS) DAVF を認めた。主な流入動脈は両側 occipital artery (OA)、両側 middle meningeal artery (MMA) で、isolate された TS の内側に存在する parasinus に流入している所見であった (Fig. 1A-1C)。左外頸動脈からの 3D-rotational angiography (3D-RA) にて parasinus は内側では上下に分かれて走行し、内側から外側にかけてびまん性に MMA と OA からの流入血管による複数の瘻孔を認めた (Fig. 1D)。Isolate された左 TS に直接流入する feeder は認めなかった。(Fig. 1E)。主な流出静脈は vein of Labbe であり、その他 temporal vein 等の retrograde leptomeningeal venous drainage を認めた (Fig. 1A-1C)。静脈相では左 TS、sigmoid sinus (SS) は描出されなかった (Fig. 1F)。症候性の DAVF (Borden type III、Cognard type II a+b) と判断し、血管内治療を施行した。

血管内治療：全身麻酔下に右大腿動脈と右大腿静脈に 6Fr シースを挿入した。6Fr Envoy (Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) を 4.2Fr FUBUKI (Asahi Intecc, Aichi, Japan) を coaxial に左外頸動脈へ誘導

した。次に左内頸静脈に 6Fr Envoy を誘導し、閉塞部直前に留置した。0.032”または 0.035” Radifocus Guidewire (Terumo, Tokyo, Japan) と 3.2Fr TACTICS (Technocrat, Aichi, Japan) あるいは 4.2Fr FUBUKI を用いて閉塞部を通過しようとしたが、emissary vein の方向に貫通してしまい、SS に進めることは不可能であった。そこで経静脈的塞栓術は断念し、液体塞栓物質を用いた経動脈的塞栓術を試みることにした。Marathon microcatheter (Medtronic, Minnesota, USA) を左外頸動脈に留置していた 4.2Fr FUBUKI より挿入し、0.010 CHIKAI (Asahi Intecc, Aichi, Japan) を使用して MMA の petrosquamous branch を選択した。マイクロカテーテルを瘻孔近くまで誘導したところ、マイクロガイドワイヤーが瘻孔を通過して内側で上方を走行する parasinus へと挿入された。マイクロカテーテルを追従させたところ、追従して parasinus 内へ留置することができたため、液体塞栓物質ではなく、コイル塞栓で治療した。瘻孔は parasinus のみで、その他の sinus wall には存在しないため、parasinus のみをコイル塞栓する方針とした。コイルが血流に流され逸脱することが予想されたが、isolated sinus か cortical vein にトラップされるのみで特にリスクはないと判断し、留置したところ、コイル (ED10 ExtraSoft 1.5x3 と 2x3 (KANEKA MEDICS, Osaka, Japan)) が isolated sinus へ流れ、cortical vein 起始部でトラップされた (Fig. 2A)。Parasinus 内からのコイル塞栓ではコイルが安定しないため、マイクロカテーテルを isolated sinus に誘導して isolated sinus 内からコイル塞栓する方針に変更した (Fig. 2A)。Isolated sinus 内を ED10 アンフイニ ExtraSoft (計 19 本、300cm) で塞栓した。次に isolated sinus 内から parasinus にかけてマイクロカテーテルを引きながら ED10

Complex 3x6 で塞栓し、parasinus 内は 1.5mm から 2.5mm のコイルで密に packing した。最後に 20% n-butyl-cyanoacrylate (NBCA) (B. Braun Melsungen AG, Melsungen, Germany) で残存した parasinus と fistula、さらに流入動脈である MMA を塞栓した (Fig. 2B)。血管造影で動静脈瘻の消失が確認されたため (Fig. 2C, 2D)、手技を終了した。術後症状は改善し、独歩退院した。

流入動脈である MMA に挿入したマイクロカテーテルからの選択撮影 (Fig. 2E) や左外頸動脈からの 3D-RA (Fig. 2F) の血管径測定値から瘻孔径は約 1mm と推定された。

症例 2 : 79 歳、男性。

主訴 : 眼球結膜充血、複視。

既往歴 : 腎癌 (右腎摘出)、糖尿病

現病歴 : 3 ヶ月前より複視が出現し、近医眼科を受診した。経過観察となっていたが、1 ヶ月後に眼球結膜の充血も認められたため、再度眼科を受診し、cavernous sinus (CS) DAVF が疑われ、当科紹介となった。既往歴より腎機能障害認めるため、全身麻酔下に一期的に脳血管撮影検査と血管内治療を施行する方針とした。

検査所見・血管内治療 : 全身麻酔下に右大腿動脈と右大腿静脈に 6Fr シースを挿入した。脳血管撮影で右 CSDAVF を認めた。右 MMA の frontal branch から反回する流入血管と右 accessory meningeal artery (AMA) からの流入動脈が合流し、その後右 MMA の petrous branch からの流入血管が合流して右 CS 後方外側上部に瘻孔を形成している所見を認めた (Fig. 3A, 3B)。右 superior ophthalmic vein (SOV) を介して右 angular vein / facial vein と左 SOV への流出経路を認め、右 inferior petrosal

sinus (IPS) と右内頸静脈は閉塞していた (Fig. 3A–3D)。右 CS へのアプローチとしては流出経路としての右 angular vein / facial vein を利用する方法も考えられたが、頸静脈へのこれらの vein の合流部が血管撮影上確認できず、困難と判断し、右内頸静脈からの IPS 経路で右 CS にアプローチした。6Fr Envoy を右静脈角まで誘導し、0.035 Radifocus Guidewire で閉塞した右内頸静脈に進めるように試みたが、不可能であった。対側からのアプローチも考えられたが、流入血管の1つである AMA の径が比較的太くて蛇行も少ないため、経動脈的に右 CS にアプローチした。7Fr Roadmaster (Goodman, Aichi, Japan) を 4Fr Cerulean (Medikit, Tokyo, Japan) を coaxial に右外頸動脈へ誘導し、0.010 CHIKAI と Marathon を使用して右 AMA を選択した。マイクロカテーテルから撮影して fistula から CS、SOV まで造影されることを確認し (Fig. 4A)、fistula を超えて右 SOV までマイクロカテーテルを誘導した (Fig. 4B)。右外頸動脈からの 3D-RA の血管径測定値から瘻孔径は約 0.7mm と推測された (Fig. 4C)。まず ED10 ExtraSoft 1.5~3.5mm のサイズのコイルで SOV を部分的に塞栓した。次に CS 内の shunted pouch に近い部分にコイルを留置し、このコイルを足場として fistula、流入動脈の順に同コイルの 1.5~4mm のサイズで塞栓した (Fig. 4D)。血管造影で動静脈瘻の消失が確認されたため (Fig. 4E, 4F)、手技を終了した。術後症状は改善し、独歩退院した。

## 考察

DAVF の治療法としては、特に海綿静脈洞病変では経静脈的に shunted pouch のみを塞栓 (superselective shunt occlusion: SSSO) できれば

理想的である<sup>1)</sup>。しかし **fistulous point** へのマイクロカテーテルの誘導が困難な場合や、**shunted pouch** の構造上の問題で静脈側からの超選択的な塞栓が困難な場合もある。このような場合は静脈洞ごと閉塞することになるが、罹患した静脈洞が正常灌流に参与している場合は不可能であり、また静脈洞の閉塞により経静脈的アプローチ自体困難な場合がある。TVEによる根治困難な症例に対し、最近ではNBCAやOnyx等の液体塞栓物質を用いたTAEによる根治が試みられるが、**dangerous anastomosis** を介した頭蓋内動脈や脳神経栄養動脈への逆流の危険があり、特に症例2のCSDAVFには使用を控えるべきである。更には液体塞栓物質が瘻孔を超えてdrainerに到達せず、**feeder occlusion** となり根治に至らないこともある。今回我々が経験した2例では経動脈的にマイクロカテーテルを流入動脈から**fistula**へ誘導、通過し、罹患静脈洞内へ挿入することが可能であった。症例1では**isolated sinus**と**fistulous point**の存在する**parasinus**を閉塞、症例2では**fistulous point**の静脈洞側と流入血管側を選択的にコイル塞栓し、根治することができた。本症例で施行された、いわゆる**transarterial sinus coiling**は閉塞静脈洞を介さないアプローチの簡便性、**fistulous point**閉塞の確実性という面で有用であり、硬膜動静脈瘻治療の選択肢の1つとして考慮して良いと思われた。

これまでに**transarterial sinus coiling**で加療された報告例は本症例を含め16例であり、罹患部位はTSSが5例と最も多く、次いでCSと**superior sagittal sinus**が4例と多かった(Table 1)<sup>2)-10)</sup>。Flow-directed catheterで治療された報告例は1例のみであったが、本症例では2例とも**flow-directed catheter**で治療することができ、本治療における**flow-directed catheter**の有用性を示唆する結果となった。アクセスルー

トとして使用された流入動脈としては MMA が最も多かった。MMA は蛇行が少なく TAE の際に治療対象の血管として選ばれることが多く、transarterial sinus coiling のアクセスルートとして最も適した血管と思われる。また 1 例を除く全ての症例が Borden type III / Congard type II a+b 以上のステージで罹患静脈洞が isolated sinus、あるいは nonsinusal type であり、CSDAVF に関しては全例 Satomi stage II で<sup>11)</sup>、アプローチ困難な症例に対して適用されたことが推測される。逆に言えばステージが進行するにつれて流入動脈が発達し、transarterial sinus coiling に適した流入動脈が現れる可能性が高くなることも推測される。ステージが進行した DAVF では transarterial sinus coiling も治療法の 1 つとして考慮し、流入血管の走行や径を評価することも重要で、特に CS 部を直接灌流する硬膜枝である AMA は、CSDAVF においては全例アプローチルートとして利用されており<sup>2)-10)</sup>、その血管構築の評価は重要であると思われる。1 例のみ Borden type I / Cognard type IIa の症例があり、TSSDAVF で罹患静脈洞が正常灌流に関与していた。しかし shunted pouch の超選択的塞栓術が施行できず、transarterial sinus coiling で根治されたが、このような症例にも有用であると思われる。

組織学的に DAVF における瘻孔の径は 30~200  $\mu$  m と報告されているが<sup>12)13)</sup>、これまでの報告例では 0.56~0.83mm のマイクロカテーテルが瘻孔を通過しており<sup>2)-10)</sup>、我々の症例でも 3D-RA で測定したところ瘻孔の径は症例 1 では約 1mm、症例 2 では約 0.7mm と推測された (Fig. 2F, 4C)。2 症例とも 10 サイズのマイクロカテーテルでも誘導できた可能性があり、その場合は使用できるコイルの variation が増える。以上よりまずはコイルが使用可能な細径の braided catheter を試み、困難であれば

より細径の flow-directed catheter を選択することにより治療中の操作性が改善する。ただし本症例で使用した Marathon 以外の flow-directed catheter ではコイルの使用が制限される。

Transarterial sinus coiling の欠点としては、瘻孔の径と同じくらいの外径のマイクロカテーテルを挿入するとカテーテルの動きに制限がかかり、複数のシャントが存在する場合に他のシャント部位へのカテーテル誘導や、コイル塞栓の際の微妙なカテーテルコントロールが困難となることである。

#### 結語

TVE が困難な DAVF に対し、transarterial sinus coiling による治療が有用であった 2 例を報告した。治療対象とする罹患静脈洞や shunted venous pouch への経静脈的アプローチが困難な症例において本治療は有用と思われ、flow-directed catheter でも治療可能である。本治療が可能な症例は稀であると思われるが、常に治療の選択肢の 1 つとして考慮しながら流入動脈の径と走行を評価することが重要であると思われる。

#### 利益相反開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

#### 文献

- 1) Satow T, Murao K, Matsushige T, et al. Superselective shunt occlusion for the treatment of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. Neurosurgery 2013; 73: ons100-5.

- 2) Baik SK, Kim YW, Lee SW, et al. A treatment option for nontraumatic adult-type dural arteriovenous fistulas: transarterial venous coil embolization. *World Neurosurg* 2014; **82**: 417-22.
- 3) Fukai J, Terada T, Kuwata T, et al. Transarterial intravenous coil embolization of dural arteriovenous fistula involving the superior sagittal sinus. *Surg Neurol* 2001; **55**: 353-8.
- 4) Kiyosue H, Okahara M, Matsumoto S, et al. Coil embolization of superior sagittal sinus dural arteriovenous fistula by transarterial intrasinus catheterization. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2004; **27**: 405-7.
- 5) Layton KF, Nelson MD, Kallmes DF. Transarterial coil embolization of the venous component of aggressive type 4 dural arteriovenous fistulas. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006; **27**: 750-2.
- 6) Ohara N, Toyota S, Kobayashi M, et al. Superior sagittal sinus dural arteriovenous fistulas treated by stent placement for an occluded sinus and transarterial embolization. A case report. *Interv Neuroradiol* 2012; **18**: 333-40.
- 7) Shiragami T, Takada H, Akai T, et al. Sinus coil embolization for dural arteriovenous fistula by trans-arterial approach: a case report. *Jpn J Stroke* 2010; **32**: 68-73.
- 8) Takegami T, Imai K, Umezawa K, et al. A case of cavernous sinus dural arteriovenous fistula successfully treated with selective transarterial embolization of the fistulous point using platinum coils.

- JNET J Neuroendovasc Ther 2012; 6: 51-55.
- 9) Tokunaga K, Barath K, Martin JB, et al. Transarterial approach for selective intravenous coil embolization of a benign dural arteriovenous fistula. Case report. J Neurosurg 2003; **99**: 775-8.
  - 10) Yamauchi T, Koguchi Y, Matsuura I, et al. Transarterial embolization with coils via accessory menigeal artery for the cavernous sinus dural arteriovenous fistula: a case report. JNET J Neuroendovasc Ther 2015; 9: 31-36.
  - 11) Satomi J, Satoh K, Matsubara S, et al. 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.
  - 12) Hamada Y, Goto K, Inoue T, et al. Histopathological aspects of dural arteriovenous fistulas in the transverse-sigmoid sinus region in nine patients. Neurosurgery 1997; **40**: 452-6.
  - 13) Nishijima M, Takaku A, Endo S, et al. Etiological evaluation of dural arteriovenous malformations of the lateral and sigmoid sinuses based on histopathological examinations. J neurosurg 1992; **76**: 600-6.

図表の説明

Fig. 1

(A) Right external carotid angiogram of A-P view shows the dural

arteriovenous fistula on the parasinus of left transverse sinus mainly fed by middle meingeal artery and occipital artery. Left external carotid angiogram of A-P view (B) and lateral view (C) demonstrates the left transverse sinus dural arteriovenous fistula mainly fed by occipital artery and middle meningeal artery with shunting flow toward parasinus, retrograde venous drainage into cortical veins including vein of Labbe via isolated transverse sinus. 3D-rotational aingography via left external carotid artery of right anterior oblique view reveals there are multiple diffuse fistulas on the parasinus (D) and 3D-rotational aingography via left external carotid artery of left posterior oblique view shows there is no fistulaous point on the isolated transverse sinus (E). (F) The left internal carotid angiogram of A-P view in the venous phase does not reveal left transverse and sigmoid sinus.

Fig. 2

(A) Selective angiogram of A-P view from microcatheter shows it is in the left isolated transverse sinus via left middle meningeal artery, fistula and parasinus. (B) Left external carotid angiogram of A-P view demonstrates the coil mass in the isolated transverse sinus and parasinus, and n-butyl-cyanoacrylate cast in the rest of parasinus, fistula and the middle meningeal artery. Right (C) and left (D) common carotid angiogram of A-P view shows total occlusion of the fistula. (E) Selective angiogram of A-P view via the left middle

meningeal artery shows fistula point (arrowhead) at the internal part of parasinus of the left transverse sinus. (F) 3D rotational angiography (cranial  $70^{\circ}$ ) demonstrates the diameter of middle meningeal artery and parasinus adjacent to the fistula point (arrowhead).

Fig. 3

Left external carotid angiogram of A-P view (A) and lateral view (B) demonstrates the right cavernous sinus dural arteriovenous fistula mainly fed by right accessory meningeal artery and middle meningeal artery with shunting flow toward superior ophthalmic vein. Inferior petrosal sinus is occluded. (C) Right external carotid angiogram of A-P view in the venous phase shows the retrograde venous drainage into the bilateral superior ophthalmic vein and right angular / facial vein. (D) Right internal carotid angiogram of A-P view in the venous phase reveals the right internal jugular vein is occluded.

Fig. 4

(A) Selective angiogram of lateral view via the right accessory meningeal artery shows the fistula (arrowhead) at the superior part of the cavernous sinus and drainage into superior ophthalmic vein. (B) The angiogram of lateral view demonstrates the successful advancement of the microcatheter into the superior ophthalmic vein via cavernous sinus. (C) 3D rotational angiography of right posterior

oblique view demonstrates the diameter of accessory meningeal artery adjacent to the fistulous point (arrowhead). Fluoroscopy of lateral view (D) after selective shunt embolization shows the coil mass in the superior ophthalmic vein and the cavernous sinus adjacent to fistulous point (arrowhead) and the feeder. Right external carotid artery angiogram of A-P view (E) and lateral view (F) reveals complete obliteration of the cavernous sinus dural arteriovenous fistula.

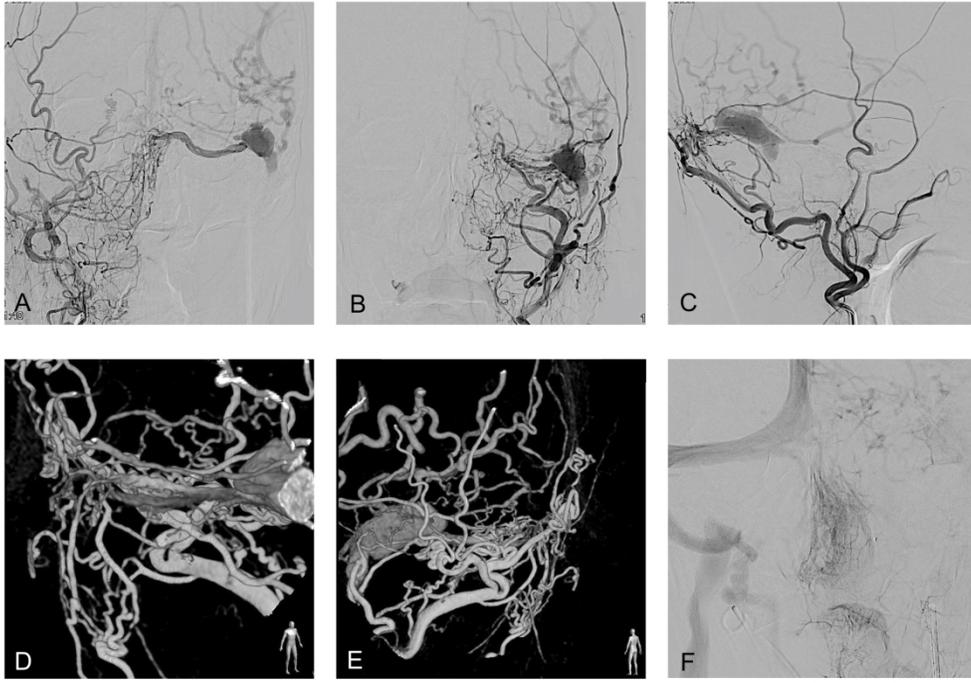


Fig. 1

254x190mm (300 x 300 DPI)

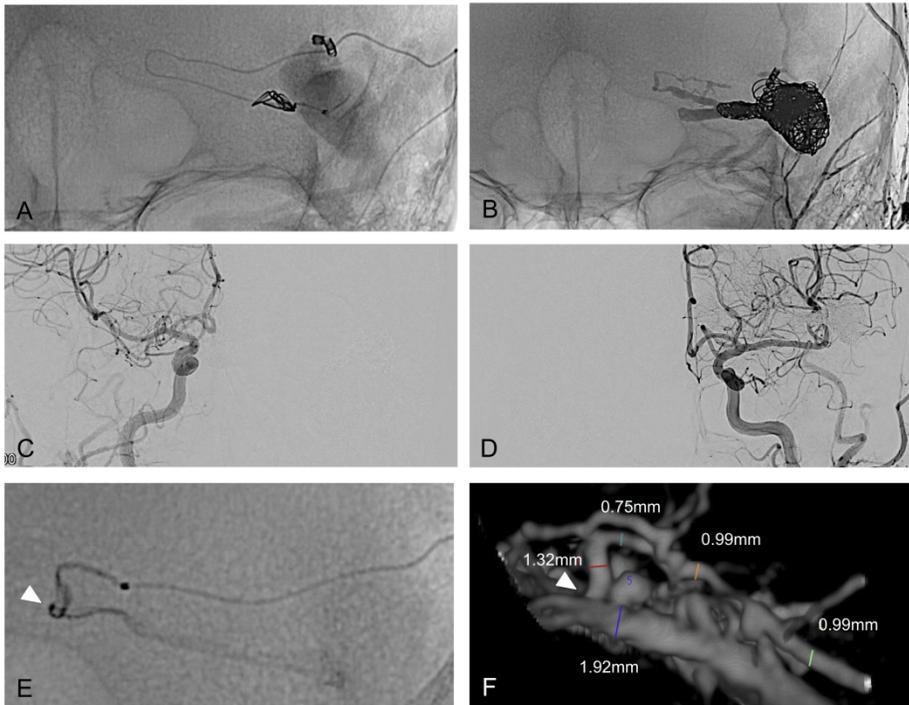


Fig. 2

254x190mm (600 x 600 DPI)

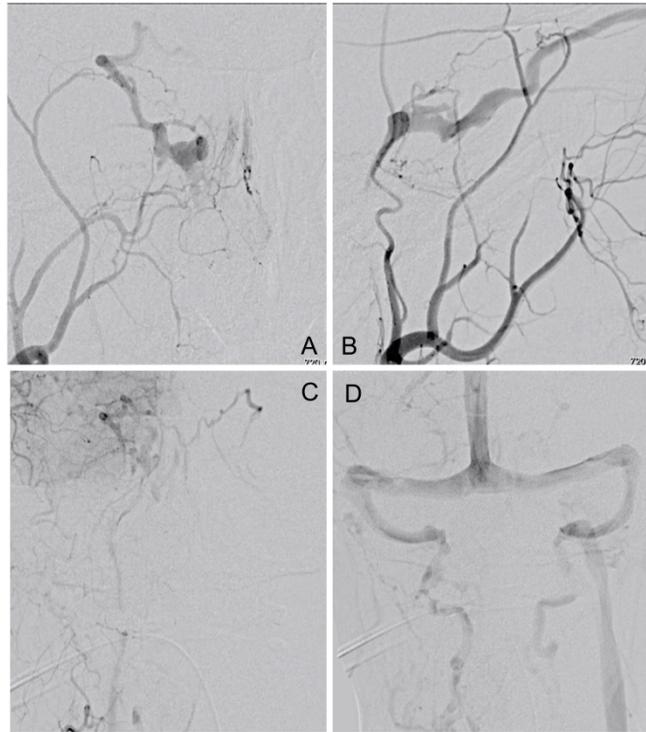


Fig. 3

254x190mm (600 x 600 DPI)



Fig. 4

254x190mm (600 x 600 DPI)

Table 1: Summary of 16 cases of transarterial sinus embolization using coils previously reported in the literature

First author and year	Location	Access route	Classification		Catheter	Catheter tip (mm)
			Satomi	Borden / Cognard		
Fukui (2001)	SSS	MMA		III / II a+b	Prowler-14	0.63
Tokunaga (2003)	TSS	MMA		I / II a	Excel-14	0.63
Kiyosue (2004)	SSS	MMA		III / II a+b	(18 size)	0.83
Layton (2006)	Tentorium	MMA		III / III	Echelon-10	0.56
	Tentorium	MMA		III / IV	Echelon-10	0.56
Shiragami (2009)	TSS	MMA		III / II a+b	Renegade-18	0.83
Ohara (2012)	SSS	MMA		III / II a+b	Marathon	0.5
Takegami (2012)	CS	AMA	II		Excelsior-1018	0.67
Baik (2014)	SSS	MMA		III / II a+b	NA	0.56 - 0.63
	CS	AMA	II		NA	0.56 - 0.63
	TSS	MMA		III / II a+b	NA	0.56 - 0.63
	TSS	MHT		III / II a+b	NA	0.56 - 0.63
Ymauchi (2015)	CS	AMA	II		Headway-17	0.56
Murakami (2016)	SLSW	AFR		III / II a+b	SL-10	0.56
Our case 1	TSS	MMA		III / II a+b	Marathon	0.5
Our case 2	CS	AMA	II		Marathon	0.5

AFR: artery of the foramen rotundum, AMA: accessory meningeal artery, CS: cavernous sinus, MHT: meningohypophyseal trunk, MMA: middle meningeal artery, SLSW: sinus of the lesser sphenoid wing, SSS: superior sagittal sinus, TSS transverse-sigmoid sinus