

1) 論文種別

症例報告

2) 論文タイトル

横・S 状静脈洞部硬膜動静脈瘻の治療効果判定に Arterial Spin Labeling:ASL が有用であった 1 例

3) 全員の著者名

岩村暢寿<sup>1) 2)</sup> 緑川 宏<sup>1)</sup> 角田晃久<sup>2)</sup> 渋谷剛一<sup>2)</sup>

4) 著者全員の所属施設・部署 (論文が執筆された所属)

1) 青森県立中央病院 神経血管内治療部

2) 青森県立中央病院 放射線部

5) 連絡著者の氏名・連絡先 (所属施設・部署名, 住所, 電話番号, メールアドレス)

〈連絡先: 青森県立中央病院 放射線部兼神経血管内治療部 岩村暢寿 〒 030-8553 青森県青森市東造道 2 丁目 1-1 Tel: 017-726-8111 E-mail: [m02012mi@jichi.ac.jp](mailto:m02012mi@jichi.ac.jp)〉

6) キーワード 硬膜動静脈瘻, Arterial Spin Labeling

7) 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】 Transe-sigmoid sinus dural arteriovenous fistula: TSS dAVF の治療効果判定に Arterial Spin Labeling: ASL が有用であった 1 例を経験したので報告する。【症例】 60 代, 男性。脳血管撮影にて TSS dAVF の診断, TAE, TVE でシャントはほぼ消失し, 術前 ASL でみられた流出静脈の高灌流も治療後に消失した。半年後の脳血管撮影で再発を認め, ASL でも直静脈洞に高灌流がみられ, 脳血管撮影と ASL の所見は一致していた。【結論】 dAVF での治療効果判定に ASL での経過観察は, 有用であると考えられた。

## 緒言

Arterial Spin Labeling: ASL は, MRI 装置を用いて非造影で perfusion 画像を得るための撮像技術で, 脳血管障害<sup>1)</sup>や脳腫瘍の悪性度診断<sup>2)</sup>に広く臨床応用されている。Dural arteriovenous fistula: dAVF の診断においては脳血管撮影が gold standard ではあるが, ASL は静脈洞内や皮質静脈の流出経路の評価が可能で, CVR の評価<sup>3)</sup>に利用できる。今回我々は, 横・S 状静脈洞部硬膜動静脈瘻の治療効果判定に ASL が有用であった 1 例を経験したので文献的考察も含めて報告する。

## 症例提示

患者：60 代, 男性

主訴：物忘れ

既往歴：高血圧, 脂質異常症, 前立腺肥大症

家族歴：特記すべき事なし

現病歴：X-1 ヶ月ほど前から物忘れを自覚するようになり，徐々に症状が増悪していた．X-1 日前に自動車事故を起こし，運転をしないように言われていたが，X 日に車で畑仕事に行きその後下肢の脱力があり転倒を繰り返し，トンネルで倒れているところを発見され当院救急救命センターに搬送された．

入院時現症：JCS 1，GCS15 (E4V5M6) で明らかな四肢麻痺は認めないが，認知機能障害が疑われた．

画像所見：DWI で両側後頭葉皮質下に高信号を認めた (Fig. 1A)．ADC map で同部位は軽度上昇がみられ，venous congestion に伴った vasogenic edema と考えられた (非提示)．T2\*では皮質静脈と思われる脈管の著明な拡張を認めた (Fig. 1B)．TOF-MRA の元画像で右 S 状静脈洞 (sigmoid sinus: SS) ，横静脈洞 (Transversus sinus: TS) ，静脈洞交会に両側後頭動脈 (occipital artery: OA) からのシャントと考えられる線状・点状の高信号を認めた (Fig. 1C) ．ASL では右 TS，左 TS から SS，上矢静脈洞 (superior sagittal sinus: SSS) や直静脈洞 (straight sinus: StS) への高灌流がみられた (Fig. 1D・E)．脳血管撮影では，両側 OA，中硬膜動脈 (middle meningeal artery: MMA) ，右後大脳動脈 (posterior cerebral artery: PCA) ，後硬膜動脈 (posterior meningeal artery: PMA) ，左上小脳動脈 (superior cerebellar artery: SCA) を feeder とし，右 TS から SS，一部は静脈洞交会にシャント認めた．左 TS から SS に限局的な狭窄と右 TS から SS に広範な高度狭窄を認めた．SSS，StS から皮質静脈と深部静脈に逆行性に還流していた (Fig. 2A-C)．大脳，小脳の静脈うっ滞が著明で Pseudophlebitic pattern: PPP を認めた (Fig. 2D)．

治療経過：複数の動脈からシャントがあるため，経動脈的塞栓術（transarterial embolization: TAE）にてシャント血流を減少させてから経静脈的塞栓術（transvenous embolization: TVE）を行う方針とした．1回目は右 OA の関与する分枝，2回目は左 OA の関与する分枝を選択的に，10%の n-butyl-2-cianoacrylate: NBCA で塞栓した．シャントは完全消失でないもののシャント血流は著明に減少した．3回目は左大腿動脈に 4F ロングシースを右大腿静脈に 6F ロングシースを留置した．全身へパリン化し，左 internal jugular vein に 6F ENVOY (Cordis, Johnson & Johnson, Miami, Florida, USA) を留置し，セルリアン G 127 cm (Medikit, Tokyo, Japan) を左 SS から TS を経由し左 TS 遠位に留置し，Echelon-14 (Covidien, Medtronic, Irvine, CA, USA) を Synchro2 soft (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) で右 TS 遠位のシャント部に留置した．Target XL 3mm × 9cm (Stryker, Kalamazoo, MI, USA), Hyper Soft 3mm × 8cm (Terumo, Tokyo, Japan), SMART COIL 3mm × 8cm (Penumbra, Alameda, CA, USA) など計 27 本，186 cm で sinus packing を行った．次に ASAHI CHIKAI 315 EXC (ASAHI INTECC, Aichi, Japan) を SSS に留置し，Aviator Plus 5mm × 40mm (Cordis, Johnson & Johnson, Fremont, CA, USA) で左 TS から SS の狭窄部に 8atm で 30 秒拡張した．SSS や深部静脈への逆流が減少し，左 TS から SS への順行性の血流が増加した．4回目は両側の OA 分枝，右 PCA 末梢の皮質枝を feeder とする右横・S 状静脈洞近位下部の venous pouch にシャントが残存しており，前回と同様のシステムで離脱式コイル計 6 本，27 cm で塞栓した．両側外頸動脈撮影でほぼシャントは消失した (Fig. 3A・B)．

術後経過：静脈洞交会部にわずかなシャントは残存するもののシャント

は著明に減少し，術後 5 日後の TOF-MRA の元画像では静脈洞交会部にわずかな点状高信号を認め，ASL では同部位に高灌流を認めたが (Fig. 4A・B) ，新たな神経学的脱落症状の出現なく，入院 47 日目に退院となった．術後 3 ヶ月後の TOF-MRA では静脈洞交会部の高信号は増加し，ASL でも静脈洞交会部から左 TS へ高灌流域が拡大していた (Fig. 4C・D) ．シャントが増加した可能性，sinus plasty した静脈洞に再狭窄を来して静脈洞の逆流が増加した可能性が考えられた．DWI では両側後頭葉皮質下の高信号は消失し，T2\*でも拡張した脈管は消失した (Fig. 4E・F) ．術後半年後の脳血管撮影で，sinus plasty した静脈洞に再狭窄はなく，右 TS，静脈洞交会付近にシャントが増加しており (Fig. 5A・B) ，TVE を試みたがアプローチできず追加治療を断念した．放射線治療を勧めたが，患者さんは経過観察を希望された．術後 3 ヶ月後・1 年後の ASL では，脳血管撮影と同様に逆行性の血流を示唆する StS の高灌流が認められており TOF-MRA の元画像の高信号域や ASL の高灌流域の変化に注意しながら慎重にフォローしていくこととなった (Fig. 6A-H) ．

## 考察

硬膜動静脈瘻の発生頻度は，Kuwayama らによると日本における発生率は 10 万人あたり 0.29 人と報告され<sup>4)</sup>，比較的稀な疾患である．発生部位別による頻度は JR-NET2 によると海綿静脈洞部が 43.6%，横静脈洞・S 状静脈洞部が 33.4%と報告されている<sup>5)</sup>．

治療適応に関しては，皮質静脈逆流をもつ dAVF には積極的な治療介入が求められる．Satomi らは，皮質静脈逆流をもたない dAVF では 98.2%で症状の悪化を認めなかったが，皮質静脈逆流がないタイプでも 2%前後で aggressive pattern に変化した症例があることも報告されている<sup>6)</sup>

ため、皮質静脈逆流を持たない症例であっても慎重な経過観察が必要と考えられる。また、van Dijkらは、皮質静脈逆流を認める dAVF の年間死亡率は 10%、中枢神経障害に起因する重篤な有害事象発生率は年間 15%と報告されている<sup>7)</sup>。よって、Cortical venous reflux: CVR を伴う逆行性静脈洞還流のために脳静脈還流障害を呈する場合には積極的治療の適応がある。本症例のように横-S 状静脈洞部が主病変であっても、シャント血流が多く、シャントが静脈洞交会部に一部存在するような場合は完全なシャント消失による根治は困難場合が多い。静脈洞交会部硬膜動静脈瘻では aggressive な症例が多く、完全閉塞率は 25%と低く、根治の難しい病変であるとの報告もある<sup>8)</sup>。そのため、完全閉塞に至らなかった本症例のような場合は、治療後の画像でのフォローが重要となる。

近年、診断装置の進歩により非侵襲的に存在診断・フォローアップが可能であり、TOF-MRA の元画像と ASL が有用である<sup>9)</sup>。TOF-MRA の元画像では、拡張した硬膜動脈、静脈洞壁内や壁周囲に無数の高信号が描出され、シャントポイントの存在診断に有用である<sup>10)</sup>。また ASL は造影剤を用いずに脳組織に流入する動脈血に RF パルスで標識し、それを内因性のトレーサーとして非侵襲的に脳の灌流画像を撮影する方法である。流出静脈の検出ができ、術前術後評価、フォローアップ、スクリーニングに非常に有用である。ASL では dAVF のシャント部や流出静脈が高灌流となり、視覚的に認識がしやすく<sup>11)</sup>、脳血管撮影のように侵襲性も高くなく、被曝の問題もなく検査が施行可能である。MR-DSA など造影 MRI での評価も比較的侵襲性は低く有用であるが、現時点では臨床上問題となるような症状を来すことは考えにくいものの、ガドリニウムの脳内残留の報告<sup>12)</sup>もある。また Nephrogenic Systemic Fibrosis: NSF やアナフィラキ

シーショックといった重篤な副作用の危険性もあり、腎機能障害や気管支喘息をもつ症例でガドリニウム造影剤の使用が困難なこともあり、TOF-MRA, ASL の非造影でフォローすることは臨床的な価値があると考えられる。ASLでの注意点は、ラベルされた血液が、脳組織に灌流されるまでの待ち時間、Post Label Delay: PLD が存在することである。PLD の適正なタイミングは、健常例で検討した報告では、PLD は 1500-2000msec で至適な画像が得られたという報告がある<sup>13)</sup>。また、年齢の影響も受け、加齢に伴い ASL-CBF は若年者と比較すると減少することも知られている<sup>14)</sup>。当院では PLD2025 を基準としてはいるが、Labeling された血液が観察領域に入る時間に個人差があるため、適切な PLD に関しては脳血管撮影や CT/MRI での 4D image 等のシャント血流の増減を直接的に評価する gold standard との比較検討や今後の症例の積み重ねも必要である。

非造影画像の特性を比較すると、TOF-MRA の利点は high flow の部位が in-flow 効果で信号として検出されるので流入動脈～シャント部位が最も高信号に描出され、脳血管撮影とほぼ同様な所見を非侵襲的に評価できることで、欠点としては信号が微弱なため、MIP や VR の再構成画像では評価困難ため元画像を注意深く評価が必要であること、非常な微細なシャントの場合は病的所見と認識されない可能性があることである。ASL の利点は流出静脈の血流まで高信号に描出されるので、逆流する静脈洞および皮質静脈逆流を鋭敏に評価が可能であること、さらにカラーマッピング表示により視覚的な認識が容易となることで、欠点は健常者において病的意義がない部分でも高灌流が観察されることもあり解釈に苦慮する症例があること、PLD が適切でない場合は病変を見逃している可能性もあることである。

今回、我々は TSS-d AVF に対して複数回の治療を施行し、治療の評価に ASL を施行し血流の変化が確認できた。血管撮影でのシャントの消失や再発は ASL にも反映しており、特に完全塞栓でない場合は慎重な follow が必要であるが、血管撮影を繰り返すことに risk が伴うため、ASL を含めた MRI で follow することは有用と考えられた。

## 結語

TSS-dAVF の治療効果判定に ASL が有用であった 1 例を経験した。血管撮影でのシャントの消失、再発は ASL にも反映されており、ASL の評価を加えることは治療効果の判定に有用であると考えられた。

## 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。

## 参考文献

- 1) Chalela JA, Alsop DC, Gonzalez-Atavalez JB et al. Magnetic resonance perfusion imaging in acute ischemic stroke using continuous arterial spin labeling. Stroke 2000; 31: 680-687.
- 2) Noguchi T, Yoshimura T, Hiwatashi A et al. Perfusion imaging of brain tumors using arterial spin labeling: Correlation with histopathologic vascular density. AJNR Am J Neuroradiol 2008; 29:688-693.
- 3) Amukotuwa SA, Heit JJ, Marks MP, et al. Detection of cortical venous drainage and determination of the borden type of dural arteriovenous fistula by means of 3D pseudcontinuous arterial spin-labeling MRI. AJNR

- AM J Roentgenol 2016; 207:163-169.
- 4) Kuwayama N. Epidemiology survey of dural arteriovenous fistula in Japan: clinical frequency and present status of treatment. Acta Neurochir Suppl 2016; 123: 185-188.
  - 5) Hiramatsu M, Sugiu K, Hishikawa T, et al. Epidemiology of dural arteriovenous fistula in Japan: analysis of Japanese Registry of Neuroendovascular Therapy (JR-NET2). Neurol Med Chir (Tokyo) 2014; 54: 63-71.
  - 6) Satomi J, van Dijk JM, Terbrugge KG, et al. Benign cranial dural arteriovenous fistulas: outcome of conservative management based on the natural history of the lesion. J Neurosurg 2002; 97: 767-770.
  - 7) Van Dijk JM, terBrugge KG, Willinsky RA, et al. Clinical course of cranial arteriovenous fistulas with long-term persistent cortical venous reflux. Stroke 2002; 33: 1233-1236.
  - 8) Kuwayama N, Kubo M, Endo S, et al. Present Status in the Treatment of Dural Arteriovenous Fistulas in Japan. Jpn J Neurosurg 2011; 20: 12-29. (in Japanese)
  - 9) Kang JH, Yun TJ, Rhim JK, et al. Arterial spin labeling MR imaging aids to identify cortical venous drainage of dural arteriovenous fistulas. Medicine 2018; 97: e0697.
  - 10) Noguchi K, Melhem ER, Kanazawa T, et al. Intracranial dural arteriovenous fistulas: evaluation with combined 3D time-of-flight MR angiography and MR digital subtraction angiography. AJR Am J Roentgenol 2004; 182: 183-190.

- 11) Amukotuwa SA, Zaharchuk G, Marks MP, et al. Arterial spin-labeling improves detection of intracranial dural arteriovenous fistulas with MRI. *Am J Neuroradiol* 2018; 39: 669-677.
- 12) Murata N, Gonzalez-Cuyar LF, Murata K et al. Macrocyclic and Other Non-Group 1 Gadolinium Contrast Agents Deposit Low Levels of Gadolinium in Brain and Bone Tissue: Preliminary Results From 9 Patients With Normal Renal Function. *Invest Radiol* 2016; 51(7): 447-453.
- 13) Cambell AM, Beaulieu C. Pulsed arterial spin labeling parameter optimization for an elderly population. *J Magn Reson Imaging* 2006; 23: 398-403.
- 14) Wang J, Licht DJ, Jahng GH, et al. Pediatric perfusion imaging using pulsed arterial spin labeling. *J Magn Reson Imaging* 2003; 18: 404-413.

**Fig. 1**

MRI imagings before treatment

- (A) Diffusion-weighted imaging shows a hyperintense area in the subcortical white matter of the bilateral occipital lobes.
- (B) T2\*-weighted imaging shows marked vessels dilatation with suspected cortical veins.
- (C) TOF-MRA source imaging shows nodular and curvilinear hyperintensities in the right sigmoid sinus and transverse sinus.
- (D) ASL imaging shows a venous ASL signal in the bilateral transverse sinus and the left sigmoid sinus due to shunting.
- (E) ASL imaging shows bright signal intensity in the superior sagittal sinus

due to shunting.

ASL: arterial spin labeling

**Fig. 2**

Cerebral angiography imagings before treatment

- (A) A right external carotid angiogram (anteroposterior view) shows a TSS-dAVF supplied by the right OA and MMA.
- (B) A right external carotid angiogram (lateral view) shows a high-flow arteriovenous shunt to the sinus and retrograde sinus drainage to the superior sagittal and straight sinuses.
- (C) A left external carotid angiogram (anteroposterior view) shows a TSS-dAVF supplied by the left OA and MMA.
- (D) A right internal carotid angiogram (lateral view) shows cortical vein dilatation in the cerebrum and cerebellum with a pseudophlebitic pattern.

TSS-dAVF: transverse–sigmoid sinus dural arteriovenous fistula; OA: occipital artery; MMA: middle meningeal artery

**Fig. 3**

Cerebral angiography imagings immediately after embolization

- (A) A right external carotid angiogram after embolization (anteroposterior view) shows that the shunt supplied by the right OA and MMA disappeared.
- (B) A right external carotid angiogram after embolization (lateral view) shows that the retrograde sinus drainage to the superior sagittal and

straight sinuses disappeared.

OA: occipital artery; MMA: middle meningeal artery; PAA: posterior auricular artery ; TSS-dAVF: transverse–sigmoid sinus dural arteriovenous fistula;

**Fig. 4**

MRI imagings after embolization: 5 days after embolization, 3 months after embolization

- (A) TOF-MRA source imaging 5 days after embolization shows the slight hyperintensities in the sinus confluence.
- (B) ASL imaging 5 days after embolization shows bright signal intensity in the sinus confluence.
- (C) TOF-MRA source imaging 3 months after embolization shows the increased hyperintensities in the sinus confluence.
- (D) ASL imaging 3 months after embolization shows bright signal intensity in the sinus confluence and left transverse sinus.
- (E) Diffusion-weighted imaging 3 months after embolization shows disappearance of the hyperintense area in the bilateral occipital lobes.
- (F) T2\*-weighted imaging 3 months after embolization shows disappearance of the vessels dilatation with suspected cortical veins.

ASL: arterial spin labeling

**Fig. 5**

Cerebral angiography imagings 6 months after embolization

- (A) A right external carotid angiogram 6 months after embolization

(anteroposterior view) shows the recurrence of the confluence and TSS-dAVF supplied by the right OA and PAA.

(B) A right external carotid angiogram 6 months after embolization (lateral view) shows the presence of retrograde drainage to the straight sinus.

OA: occipital artery; MMA: middle meningeal artery; PAA: posterior auricular artery ; TSS-dAVF: transverse–sigmoid sinus dural arteriovenous fistula;

**Fig. 6**

ASL color map and T2 fusion imagings, TOF-MRA source imagings of treatment progress

(A) ASL color map and T2 fusion iamging before embolization shows bright signal intensity in the SSS and StS due to shunting.

(B) ASL color map and T2 fusion iamging 5days after embolization shows disappearance of the bright signal intensity in the SSS and StS .

(C) ASL color map and T2 fusion iamging 3 months after embolization shows the recurrence of slightly bright signal intensity in the StS.

(D) ASL color map and T2 fusion iamging a year after embolization shows the recurrence of remarkably bright signal intensity apparent in the StS.

(E) TOF-MRA source imaging before embolization shows hyperintensities in the SSS and StS due to shunting.

(F) TOF-MRA source imaging 5days after embolization shows the slight hyperintensities in the StS .

(G) TOF-MRA source imaging 3 months after embolization shows

disappearance of hyperintensities in the StS .

(H) TOF-MRA source imaging a year after embolization shows the recurrence of remarkably hyperintensities in the StS.

ASL: arterial spin labeling; SSS: superior sagittal sinus; StS: straight sinus

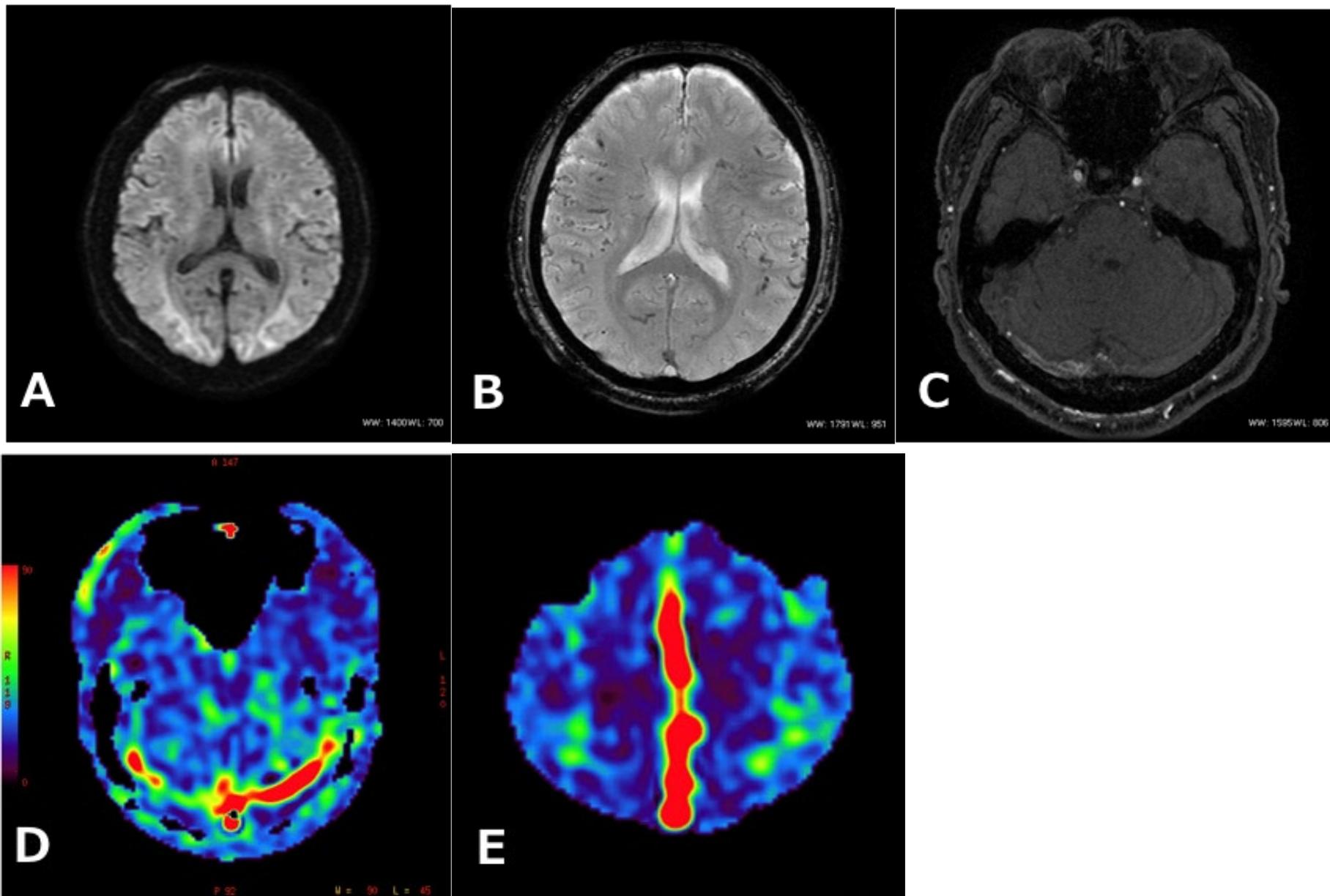


Fig. 1

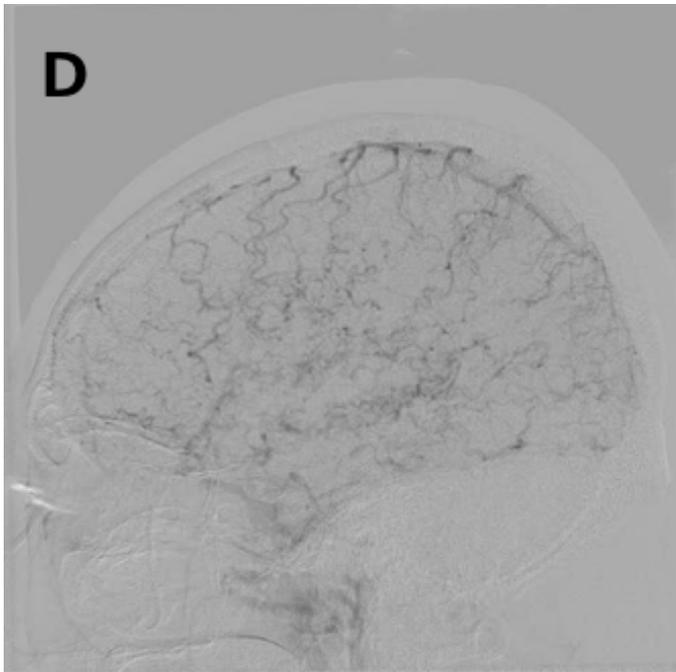
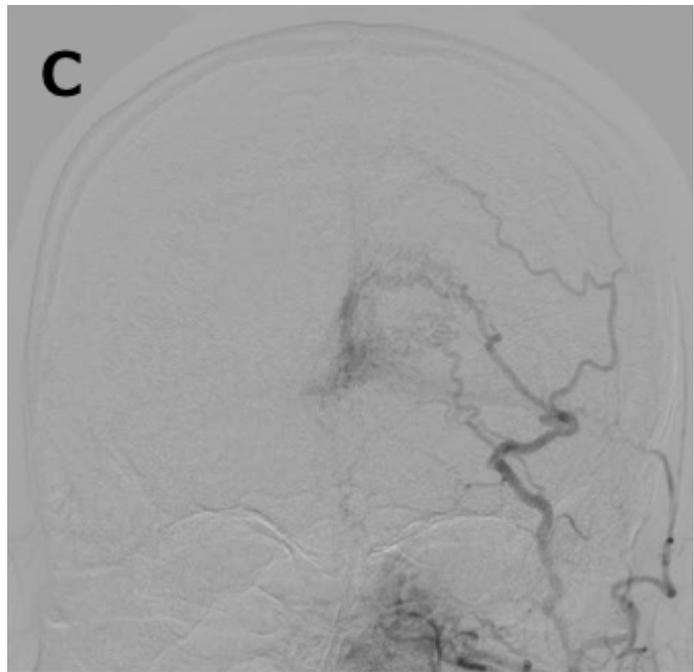
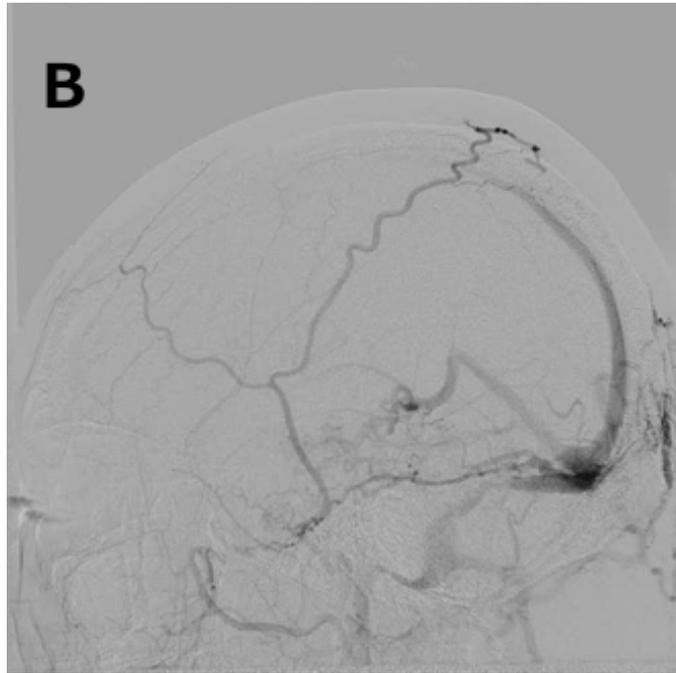
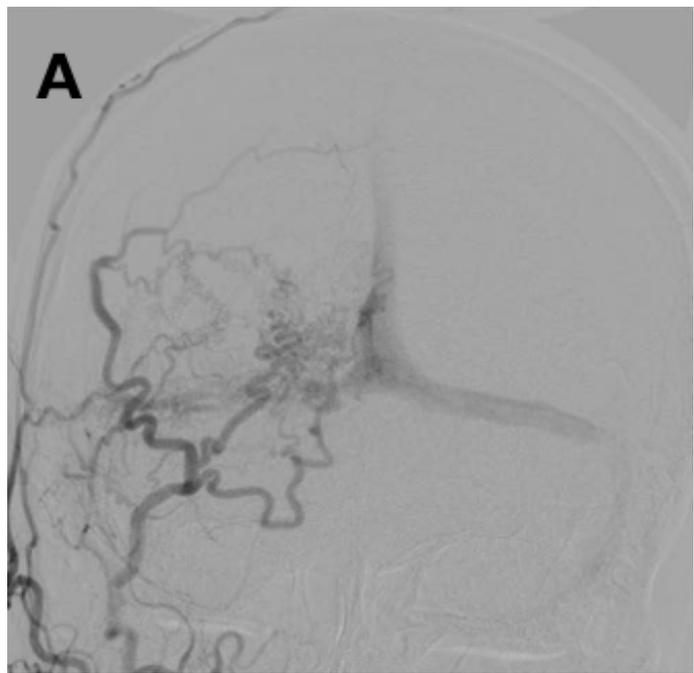


Fig. 2

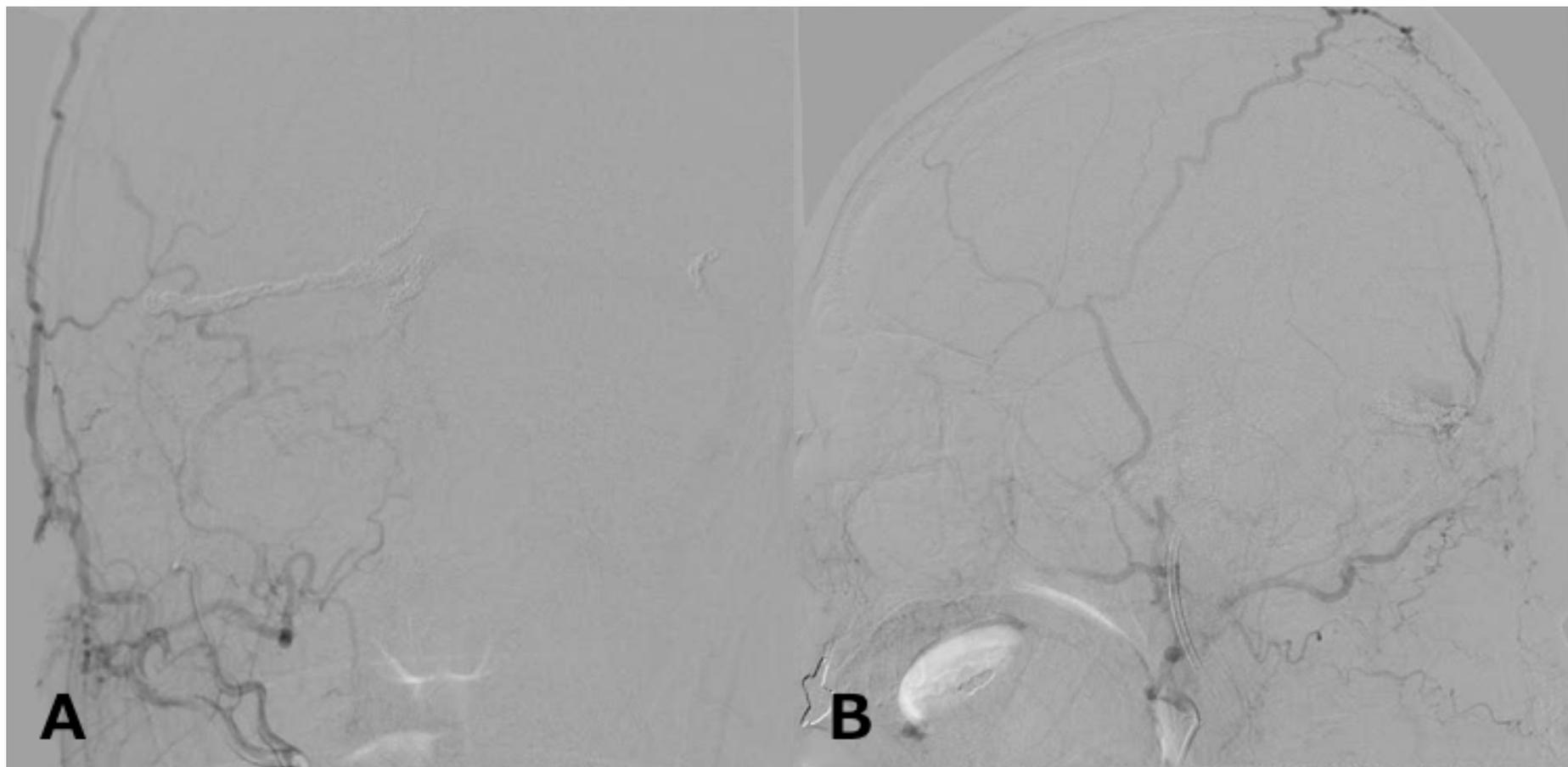


Fig. 3

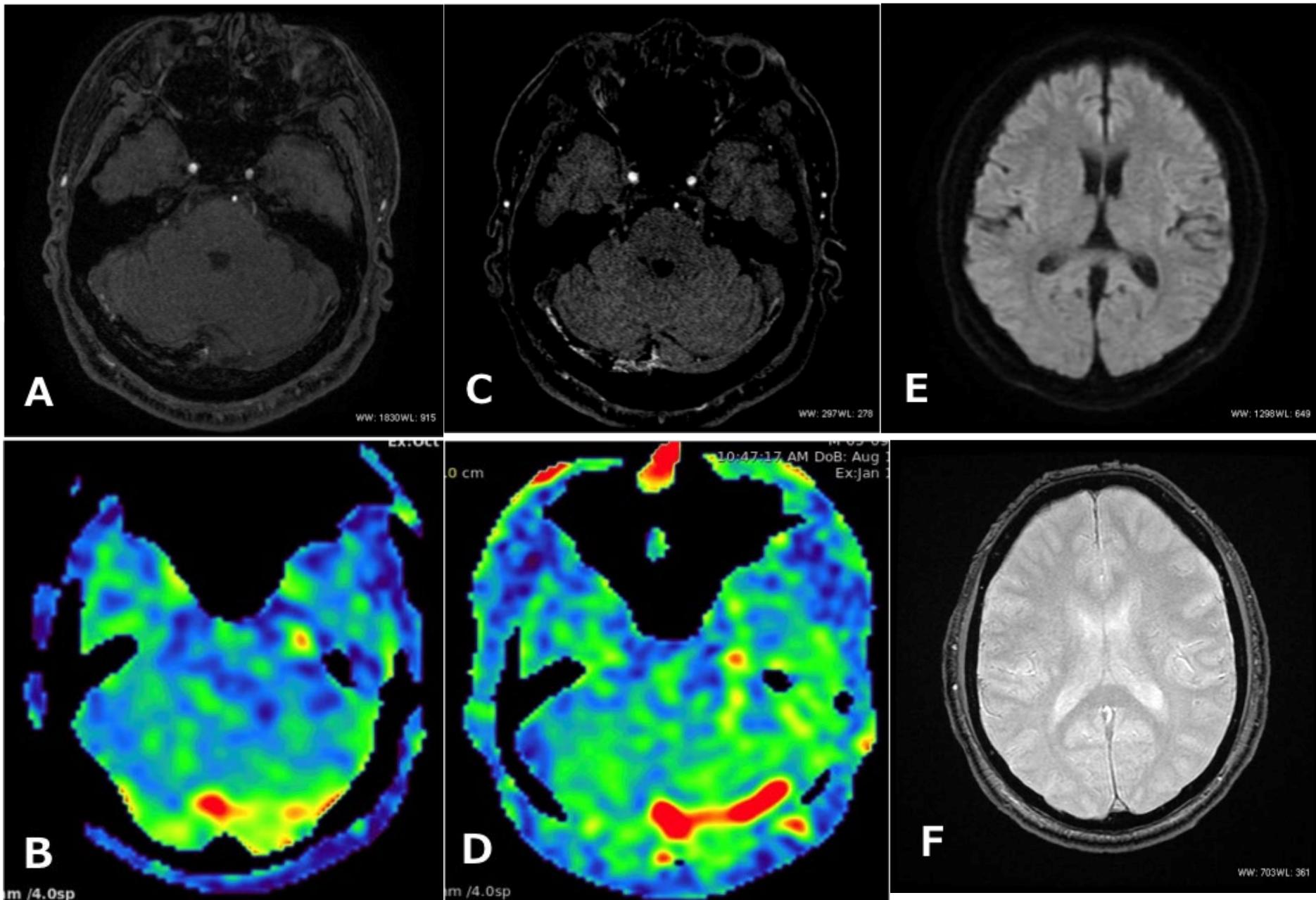


Fig. 4



Fig. 5

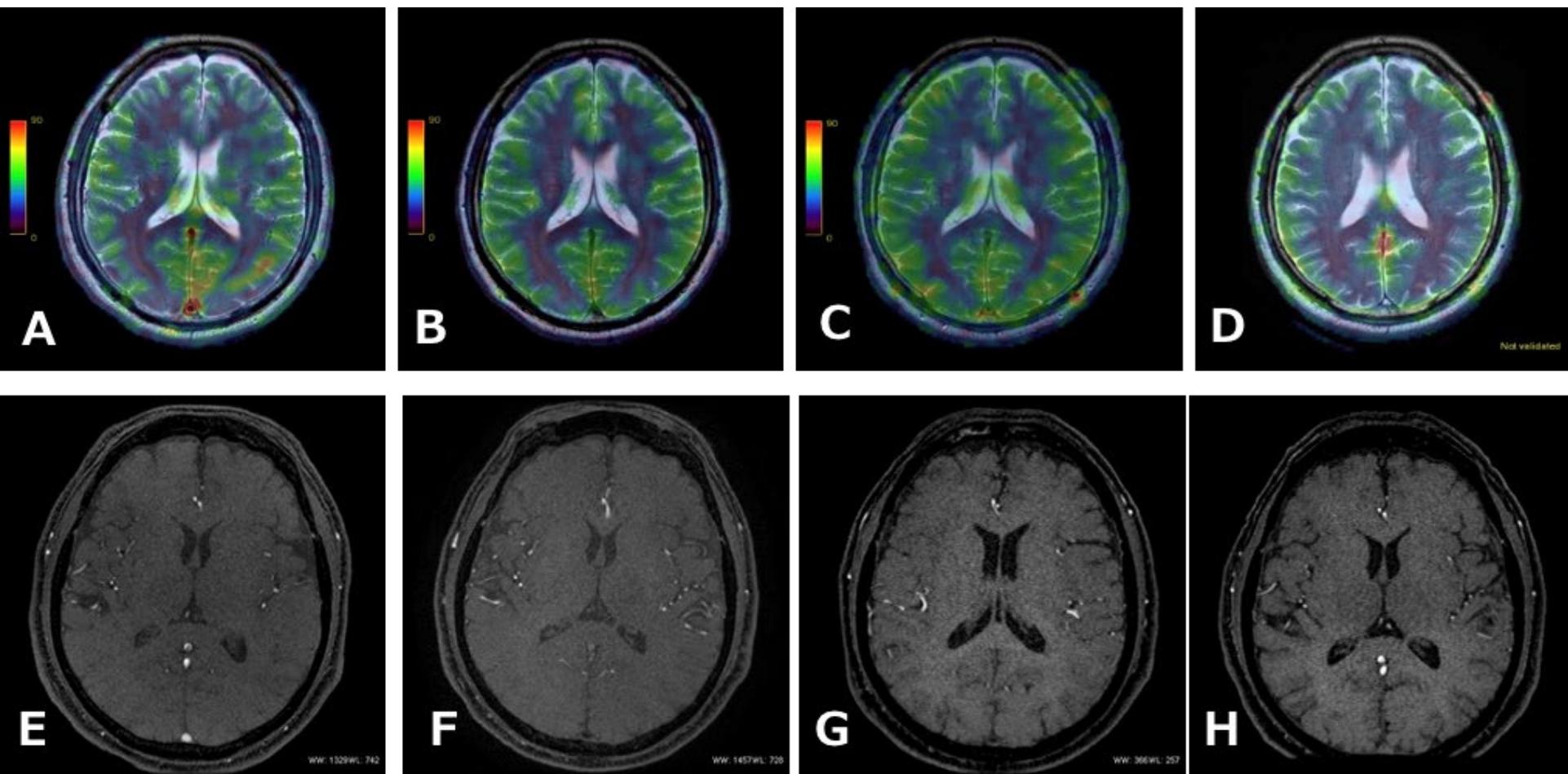


Fig. 6