

症例報告

経動脈的静脈コイル塞栓術で治療を行ったnon sinus type laterocavernous sinus硬膜動静脈瘻の1例

井上悟志¹⁾、藤田敦史²⁾、篠田幸樹¹⁾、山下俊輔¹⁾、李 泰辰¹⁾、黒田竜一¹⁾、潤井誠司郎¹⁾、栗原英治¹⁾、篠山隆司²⁾

1) 順心病院 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

筆頭著者の連絡先

井上悟志

順心病院 脳神経外科

〒 675-0122

兵庫県加古川市別府町別府 865-1

電話 079-437-3555

FAX 079-437-6785

E-mail: nsurg2000@yahoo.co.jp

Key Words: middle fossa dural arteriovenous fistula, sphenoid wing, transarterial venous embolization, coil, endovascular therapy

図 4 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。

経動脈的静脈コイル塞栓術で治療を行った non sinus type
laterocavernous sinus 硬膜動静脈瘻の1例

和文要旨

目的: Non sinus type laterocavernous sinus 硬膜動静脈瘻 (DAVF) の症例に対し、経動脈的静脈コイル塞栓術を行い良好な経過を得たので報告する。

症例: 79 歳、女性。意識障害・右片麻痺・運動性失語で搬送され、CT で左前頭葉に脳出血を認めた。DSA で左 laterocavernous sinus DAVF を認め、feeder は副硬膜動脈および左内頸動脈 meningohypophyseal trunk、single channel で、浅中大脳静脈へ直接流入し、静脈瘤を伴った。副硬膜動脈から shunt point を超えて drainer 起始部にマイクロカテーテルを誘導し、同部から feeder 側までコイルで塞栓し、shunt は消失した。

結論: Laterocavernous sinus DAVF は稀だが、経動脈的静脈コイル塞栓術で治療可能な症例がある。

緒言

Non sinus type 蝶形骨大翼部硬膜動静脈瘻 (dural arterio-venous fistula: DAVF) は稀で、文献上では、アプローチの制約から経静脈的塞栓術 (transvenous embolization: TVE) が困難なことが多く、経動脈的塞栓術 (transarterial embolization: TAE) が試みられるものの根治に至らず、開頭術が選択されることも多い¹⁾。今回我々は、出血で発症した non sinus type laterocavernous sinus DAVF の症例に対し、経動脈的静脈コイル塞栓術 (transarterial venous coil embolization) で治療を行い良好な経過を得られたので報告する。

症例提示

79 歳、女性。外傷・頭部手術等の既往なし。意識障害・右不全片麻痺・運動性失語で搬送された。初診時、Japan Coma Scale II-10、CT で左前頭葉に径 5.5cm の脳出血を認め、くも膜下出血を伴った (Fig. 1A)。

CTA で DAVF を疑う左中頭蓋窩の異常血管を認め (Fig. 1B)、副硬膜動脈 (accessory meningeal artery: AMA) が卵円孔通過後に左海綿静脈洞外側下後方の硬膜上で浅中大脳静脈に直接流入しており (矢印)、皮質静脈逆流を形成し、sylvius 裂内で静脈瘤を伴った。MRA でも同様の所見であった (Fig. 1C-E)。3D-CTA 元画像 (軸位断) で、左 AMA が卵円孔通過後に浅中大脳静脈に直接シャントを形成しており、同部は通常の海綿静脈洞部より外尾側で、laterocavernous sinus 近傍と思われた (Fig. 2A-L)。第 4 病日の DSA で左 laterocavernous sinus DAVF と診断した (Fig. 3A, B)。Feeder は AMA および左内頸動脈

meningohypophyseal trunked で、微細な feeder network を形成することなく浅中大脳静脈へ直接流入し、皮質静脈逆流を形成していた (Borden type III, Cognard type IV)。Drainer は静脈瘤を伴い、前頭葉表面を経て上矢状静脈洞に流出していた。蝶形頭頂静脈洞および海綿静脈洞は、DAVF 流出路および正常灌流のいずれも関与を認めなかった。3D-RA では、AMA 径は shunt point 直前で 1mm、瘻孔径は約 1.5mm だった (Fig. 3C)。患側 (左) 内頸動脈撮影で左内頸動脈 meningohypophyseal trunk からも feeder を認めた (Fig. 3D-E)。

第 10 病日に血管内治療を施行した。全身麻酔下に、右大腿動脈から左外頸動脈へ 5F Fubuki Dilator Kit 80cm (朝日インテック、愛知) を誘導した。治療前の左外頸動脈撮影で、AMA から浅中大脳静脈への直接 shunt を認め、その遠位部は内頸動脈 meningohypophyseal trunk からの feeder との合流部となっていた (Fig. 4A)。4.2F Fubuki 120cm (朝日インテック) を中間カテーテルとし、Excelsior XT 17 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) を Traxcess 14 (テルモ、東京) を用いて左 AMA へ誘導し、shunt point を超えて drainer 起始部に XT 17 を留置した (Fig. 4B)。Drainer 起始部の拡張部に Target 360 Soft 7mm×15cm (Stryker) で frame を作成し、同部をコイル計 9 本で密に閉塞した (Fig. 4C)。

次に、AMA 遠位側を Target Helical Ultra 2mm×3cm (Stryker) 2 本で閉塞し (Fig. 4D)、AMA 近位側を Target 360 Ultra 3mm×4cm (Stryker) などコイル計 6 本を用いて閉塞し (Fig. 4E)、shunt 血流は消失した (Fig. 4F)。

術後は著変なく経過し、回復期リハビリテーション目的で転院後、脳室腹腔シャント術を施行したのち自宅退院した。治療 15 か月後の MRA・DSA

で再発を認めず、記銘力障害はあるが麻痺・失語は改善し、外来通院中である(modified Rankin Scale 2)。

考察

Laterocavernous sinus DAVF は稀な病態で、従来は中頭蓋窩 DAVF とされることが多かったが、近年では sphenoid wing DAVF として分類されることが多い。Sphenoid wing DAVF 自体も全頭蓋内 DAVF の約 1% と少なく、2021 年のレビューでは 30 例が報告されるのみであり²⁾、血管構築も多彩で nomenclature も一定しない。Hiramatsu ら³⁾は、傍トルコ鞍領域の DAVF を海綿静脈洞との位置関係から 4 群に分類し、sphenoid wing DAVF は anterolateral group としている。蝶形骨大翼部 DAVF は、浅中大脳静脈ないし laterocavernous sinus に shunt を形成し、これらに加え蝶形脳底静脈洞や上錐体静脈洞が主な流出路となり、静脈瘤を伴うことが多く、蝶形頭頂静脈洞および海綿静脈洞の関与は比較的少ないとされる。一方、蝶形骨小翼部 DAVF は、蝶形頭頂静脈洞に shunt を形成し海綿静脈洞へ流出することが多く、画像上は海綿静脈洞部 DAVF と類似することがあり、さらにはこうした血管構築には例外もあるため診断には十分な注意が必要である^{2,3)}。本症例は、AMA が卵円孔を通過後、通常海綿静脈洞より下方と思われる laterocavernous sinus 近傍で、内頸動脈 meningohipophyseal trunk からの feeder と合流し、浅中大脳静脈へ直接 shunt を形成していた。血管撮影上、DAVF の流出路および正常静脈の灌流路のいずれにも蝶形頭頂静脈洞、海綿静脈洞の関与は認められなかった。一方で、non sinus type のため laterocavernous sinus も明瞭ではなかった。従って、shunt とこれらの静脈洞との位置関係は示せず、閉

塞海綿静脈洞から皮質静脈への逆流等の可能性は考えうるが、上記所見は蝶形骨大翼部 DAVF として矛盾しないと考えられた。蝶形骨大翼部 DAVF は皮質静脈逆流・静脈性高血圧・頭蓋内出血・症候化等のリスクが高く、悪性経過の傾向があるとされる^{2,3)}。外科治療が古典的な第 1 選択だが、近年では塞栓術が標準治療となりつつある²⁾。

Non sinus type 蝶形骨大翼部 DAVF はとりわけ稀で、Nakamura らのレビューでは 6 例が報告されているが¹⁾、これらの血管内治療では、アプローチの制約のため TVE は施行できず、3 例で液体塞栓物質による TAE が行われたものの、あくまでシャント血流の低下や病変の単純化・明瞭化等にとどまり、複数回の TAE によっても根治が得られず、最終的に 6 例全例で開頭術が行われていた。

今回我々は、non sinus type laterocavernous sinus DAVF に対し、TAVE で治療を行い良好な経過を得た。組織学的検討によると、典型的な DAVF の瘻孔径は、30～200 μm とされ⁴⁾、通常はマイクロカテーテルの通過は困難である。本症例は、微細な feeder network が存在しない所謂 single channel type であり、feeder である AMA は、shunt point 直前で若干の屈曲があり、径 s も 1mm と狭小ではあるものの、全体的に直線的で発達良好であり、瘻孔径も約 1.5mm と大きく、先端部外径 1.7F のマイクロカテーテルが容易に通過できた。

文献上、TVE 困難な DAVF に対する経動脈的静脈コイル塞栓術の報告は散見されるが^{4,5,6,7,8,9)}、sphenoidal wing DAVF に対する報告は、我々が渉猟し得た限り 2 例があるのみだった^{6,7)}。Murakami らの報告⁶⁾では、sinus of the lesser sphenoid wing への経静脈的アプローチ不成功例で、artery of foramen rotundum から SL10 を誘導し、コイルのみで完全閉塞

を得ていた。また、Shi らの報告⁷⁾では、MMA から Echelon 10 を sphenobasal sinus へ誘導し、GDC および Onyx 34 を併用して完全閉塞を得ていた。

他部位を含めた頭蓋内 DAVF に対し、経動脈的静脈コイル塞栓術を行った計 16 症例のレビュー⁸⁾では、transverse-sigmoid sinus 5 例、上矢状洞部と海綿静脈洞部が各 4 例、テント部 2 例、sinus of the lesser sphenoid wing が 1 例で、経由した feeder は中硬膜動脈 10 例、AMA 4 例、内頸動脈 meningohipophyseal trunk 1 例、artery of foramen rotundum 1 例で、マイクロカテーテルは SL-10、Echelon 10、Prowler-14、Excel-14、Headway-17、Excelsior-1018、Renegade-18、および先端径 0.83mm の 18 カテーテルのほか、Marathon が用いられており、経動脈的静脈コイル塞栓術は可能であれば他の塞栓方法よりも効果・安全性が高いとしている。また、Ryu ら⁹⁾は、海綿静脈洞部 DAVF に対し、上行咽頭動脈から Marathon を静脈洞内に誘導し閉塞している。

Isolated sinus type DAVF は TVE 困難な場合も多く^{2,10)}、近年では液体塞栓物質による TAE の報告が多い^{10,11)}。従来、TAE は TVE より根治率に劣っていたが、Onyx を用いることで根治率が向上したとされる¹⁰⁾。Kandyba ら¹¹⁾は、蝶形骨小翼部 DAVF に対し Onyx による TAE のみで治療を行っているが、adjunctive technique として、コイルによる feeder の閉塞 (pressure cooker) および内頸動脈の balloon protection を併用している。本症例ではコイルのみで閉塞したが、Shi ら⁷⁾のようにコイルに加えて液体塞栓物質を併用したほうが医療経済上は有利かもしれない。しかしながら、神経栄養血管・内頸動脈・眼動脈等への潜在的吻合の危険性に加え、飛散した塞栓物質が drainer 遠位の狭窄部を閉塞させる危険性

も考慮し、本症例では使用を控えた。加えて、海綿静脈洞部 DAVF に対する Onyx の使用は、溶媒である DMSO の毒性によると考えられる神経麻痺や心停止 (trigemino-cardiac reflex) などの重篤な合併症の可能性があり、本邦では使用が認められていない¹²⁾。もし feeder が大径かつ直線状で、瘻孔も大型であるなど、経動脈的にアプローチが可能であれば、経動脈的静脈コイル塞栓術は手技がシンプルで上記の合併症も少なく、なおかつ効果的であり³⁾、まず考慮してよい方法ではないかと我々は考えている。Murakami ら⁶⁾も我々同様にコイルのみで治療を行っているが、コイルによる isolated sinus の閉塞のみでは僅かながら shunt 血流が残存したため、feeder までコイルで閉塞し、完全閉塞を得ている。今回の症例では、AMA 遠位側は内頸動脈 meningo-hypophyseal trunk からの feeder との合流部となっており、同部からの shunt 血流残存や治療後の再発が危惧されたため、drainer 起始部から、AMA 遠位側、近位側へと、瘻孔を挟んで 3 方向に trap する形でコイル塞栓することで DAVF の完全消失が得られ、15 か月後の DSA でも再発を認めなかった。Drainer 起始部の閉塞に際しては、マイクロカテーテルの動きは瘻孔により極めて制限されるため、カテーテル先端を予め小さな強い曲がりに steam shape することで、密な塞栓が可能だった(Fig. 3B)。

結語

Non sinus type laterocavernous sinus DAVF は稀であるが、瘻孔径が大きく、feeder が太く直線状である症例では、経動脈的静脈コイル塞栓術で治療可能な場合がある。

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. Nakamura H, Sase T, Wakui D, et al. Non Sinus Type Dural Arteriovenous Fistula of the Middle Cranial Fossa: A Report of Two Cases. *Surg Cereb Stroke* 2016;44: 151-156.
2. Ghali MGZ: Sphenoid dural arteriovenous fistulas. *Neurosurg Rev.* 2021;44:77-96.
3. Hiramatsu M, Sugiu K, Haruma J, et al. Dural Arteriovenous Fistulas in the Parasellar Region Other Than the Cavernous Sinus. *Journal of Neuroendovascular Therapy* 2020; 14: 593–604
4. Baik SK, Kim YW, Lee SW, et al. A treatment option for nontraumatic adult-type dural AVFs: transarterial venous coil embolization. *World Neurosurg* 2014;82:417–422.
5. 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: 353-358.
6. Murakami T, Nakamura H, Nishida T, et al. Transarterial sinus embolization for a dural AVF in a sinus of the lesser sphenoid wing: a case report. *NMC Case Rep J* 2017;4:47–50.
7. Shi ZS, Ziegler J, Feng L, et al. Middle cranial fossa sphenoidal region dural arteriovenous fistulas: anatomic and treatment considerations. *AJNR Am J Neuroradiol* 2013;34:373-80.
8. Shimada K, Satoh K, Teshima N, et al. Transarterial Sinus Coiling for Dural Arteriovenous Fistula: Two Case Reports. *JNET*

J Neuroendovasc Ther Epub ahead of print.

9. Ryu B, Sato S, Mochizuki T, et al. Assessment of Therapeutic Access Routes for Endovascular Therapy of Cavernous Sinus-dural Arteriovenous Fistula. *JNET J Neuroendovasc Ther* 2019; 13: 367-375.
10. Imai T, Izumi T, Matsubara N, et al. The Treatment Outcome of Transarterial Embolization for Isolated Sinus Type Dural Arteriovenous Fistula between NBCA and Onyx. *Journal of Neuroendovascular Therapy* 2017; 11: 279–287.
11. Kandyba DV, Babichev KN, Stanishevskiy AV, et al. Dural arteriovenous fistula in the sphenoid bone lesser wing region: Endovascular adjuvant techniques of treatment and literature review. *Interv Neuroradiol* 2018;24:559-566.
12. Satow T. Endovascular Treatment of Cavernous Sinus Dural Arteriovenous Fistulae: Review of the Literature and Current Status. *Journal of Neuroendovascular Therapy* 2020; 14: 572–582.

図表の説明

Figure 1

A: 初診時 CT で左前頭葉の脳出血を認めた。

B: 3D-CTA で左海綿静脈洞外側下後方に shunt point(矢印)を有する硬膜動静脈瘻(DAVF、破線丸印)を認め、浅中大脳静脈へ直接流入し、静脈瘤を伴っていた(矢頭: drainer)。

C-E: MRA でも同様の所見であった(矢印:shunt point、矢頭: drainer)。

Figure 2

A-L: 術前 3D-CTA 元画像(軸位断)で、左副硬膜動脈(黒矢頭:近位側、白矢頭:遠位側)が卵円孔(FO)通過後に黄色矢印部で浅中大脳静脈(2重白矢印)に直接シャントを形成していた。

C4: 内頸動脈 C4 部、C5: 内頸動脈 C5 部、FO: foramen ovale.

Figure 3

術前 DSA

A, B: 左外頸動脈撮影正面像(A)、側面像(B)で、左 laterocavernous sinus DAVF と診断した。Feeder は副硬膜動脈(AMA)で、浅中大脳静脈へ直接流入し皮質静脈逆流を形成したのち、静脈瘤を伴い、前頭葉表面を経て上矢状静脈洞に流出していた。

C: 3D-RA 右前斜位では、AMA の径は shunt point(矢印)直前で 1mm、shunt point は径 1.5mm だった(矢頭が静脈瘤)。

D-E: 患側(左)内頸動脈撮影正面像(D)および側面像(E)で左内頸動脈 meningohipophyseal trunk からも feeder を認めた。

Figure 4

術中所見

A: 術前の左外頸動脈撮影、右前斜位(矢印が shunt point)。副硬膜動脈(AMA)遠位側は、内頸動脈 meningo-hypophyseal trunk からの feeder との合流部となっていた。

B: AMA から shunt point を超えて drainer 側にマイクロカテーテルを誘導した。

C-D: Drainer 起始部(C)から、AMA 遠位側(D、矢頭)、AMA 近位側(D、2重矢印)を順にコイルで閉塞した。

E-F: 術後の左総頸動脈撮影、正面像(E)および側面像(F)で DAVF は消失した。

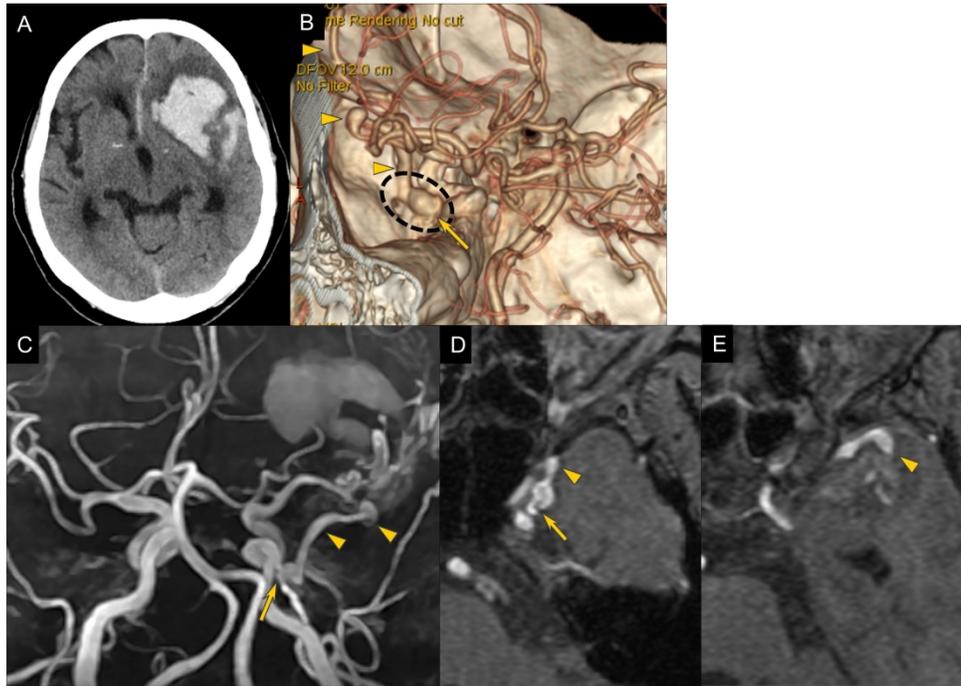


Figure 1

Figure 1

254x190mm (300 x 300 DPI)

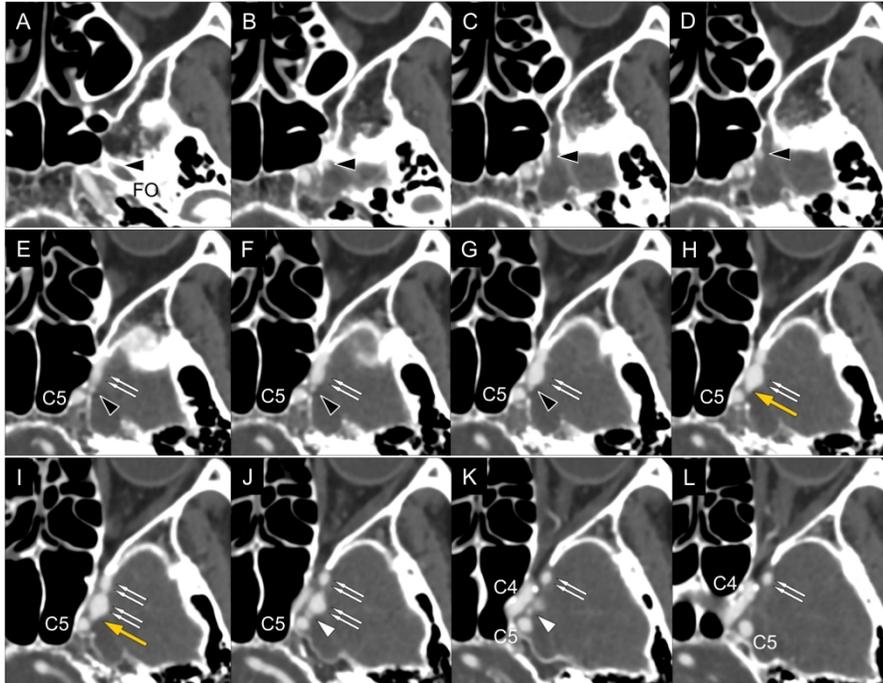


Figure 2

Figure 2

254x190mm (300 x 300 DPI)

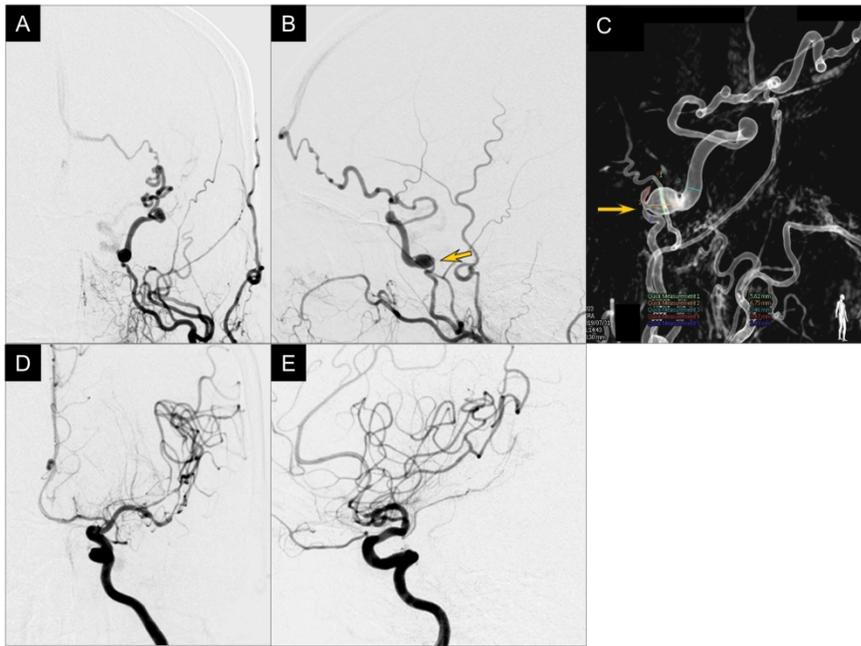


Figure 3

Figure 3

254x190mm (300 x 300 DPI)

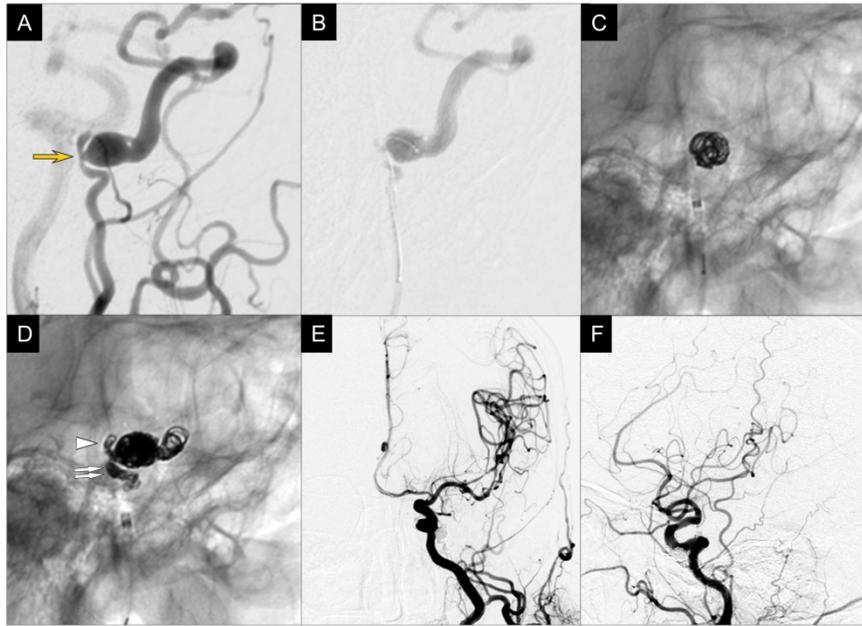


Figure 4

Figure 4

254x190mm (300 x 300 DPI)