症例報告

NBCA を用いた塞栓術後に再発した脊髄動静脈瘻の 1 手術例

三宅 茂 藤田 敦史 甲田 将章
齋藤 実 甲村 英二

Recurrence of Perimedullary Arteriovenous Fistulas after Embolization with N-butylcyanoacrylate : Case Report

by

Shigeru Miyake, M.D., Atsushi Fujita, M.D., Masaaki Kohta, M.D.,
Minoru Saitoh, M.D., and Eiji Kohmura, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Kobe University Graduate School of Medicine

The authors report a case of a 37-year-old man with recurrent of perimedullary arteriovenous fistulas (PMAVFs) located at the level of the conus medullaris after embolization with N-butylcyanoacrylate (NBCA).

The patient was treated 5 years ago in another hospital for two AVFs at separate sites including PMAVFs at the conus medullaris and a dural AVF at the sacral region by transcatheter embolization with NBCA. Complete obliteration of the PMAVFs at the conus medullaris was confirmed by angiography. The dural AVF at the sacral region was treated successfully thereafter by surgery because of recanalization. However, he was admitted to our institution with a recurrence of low back pain and thoracic tightness. Neurological examination showed a spastic paraparesis, disturbance of superficial sensation below the L4 dermatome on both sides and dysuria. Magnetic resonance images revealed an enlarged conus medullaris and many serpentine flow-void signals from the lower thoracic to the upper lumbar region. Recurrence of the AVFs at the conus medullaris was confirmed by selective angiography. He was treated surgically with the assistance of intraoperative microvascular Doppler and spinal digital subtraction angiography (DSA). He made a good postoperative recovery with gradual improvement of his neurological symptoms.

Both surgical and endovascular methods have a role in the management of PMAVFs. However, after a failed or partial embolization of a PMAVF, surgery should be considered so as to achieve complete obliteration. Intraoperative microvascular Doppler and spinal DSA are of valuable assistance in surgical closure of spinal AVFs. Close follow-up observation is also required even if complete obliteration is confirmed by angiography.

(Received May 24, 2005 ; accepted July 20, 2005)

Key words : perimedullary arteriovenous fistula, conus medullaris, intraoperative microvascular Doppler, intraoperative spinal digital subtraction angiography, recurrence

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 14 : 718-722, 2005

緒言

脊髄動静脈奇形 (arteriovenous malformation ; AVM) は最も頻度の高い脊髄血管奇形であるが、日常で遭遇す

る頻度は比較的少ない。その治療には、観血的手術、血管内手術、および定位放射線治療などがあるが、実際には根治困難な症例も多く、治療方針はいまだ確立していない。脊髄表面または軟膜下に存在する動静脈瘻 (arte-

神戸大学大学院医学系研究科脳神経外科 / 〒650-0017 神戸市中央区楠町 7-5-1 [連絡先: 三宅 茂]

Address reprint requests to: Shigeru Miyake, M.D., Department of Neurosurgery, Kobe University Graduate school of Medicine, 7-5-1 Kusunoki-cho, Chuo-ku, Kobe, Hyogo 650-0017, Japan

Fig. 1 Sagittal T1-weighted (A) and T2-weighted (B) MR imaging of the spine at admission to our institution demonstrates an enlarged conus medullaris and many serpentine flow-void signals from the lower thoracic to the upper lumbar region, and a recurrence of AVFs at the conus medullaris was suspected.

Fig. 2 Selective spinal angiograms of the left intercostal artery (A), the left L1 lumbar artery (B) and the right L3 lumbar artery (C) show the recurrence of arteriovenous fistulas at the L1-2 level.

riovenous fistula; AVF) は脊髄 AVM の一つの亜型⁵⁾⁸⁾であり、カテーテルが AVF 近傍に到達でき正常脊髄の血行が確保できる場合は、血管内治療にて根治が期待できる。また観血的手術にて根治可能な症例も存在する⁶⁾。脊髄円錐周囲に AVF が存在する場合は導入動脈が長く蛇行していることが多く、血管内治療ではカテーテルを AVF 近傍まで到達させることが困難である。しかし、馬尾神経間に介在してクモ膜下腔に存在するため観血的手術による治療が可能であり、根治が期待できる⁴⁾⁸⁾。今回われわれは、NBCA を用いた塞栓術後に完治したと考えられていた脊髄 AVF がクモ膜下出血にて再発し、手術治療を

施行して良好な結果を得たので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：37 歳，男性

主 訴：腰痛，下肢のしびれ感，胸部絞扼感

既往歴：22 歳で尾骨骨折，25 歳で腰椎椎間板ヘルニアと診断されたが，いずれも保存的に治療され，腰痛などの症状は消失した。

家族歴：特記すべきことなし

Fig. 3 A, B: Intraoperative photograph shows the nidus of the fistulas comprised of large, dilated, tortuous vessels, partially thrombosed with NBCA, developing adjacent to the cauda equinas (A) and the fistula point (B).
 C: Intraoperative microvascular Doppler demonstrates a signal ascribable to arterialised vein (upper), and the absence of flow signal after occlusion of the feeding arteries (lower).
 D: Intraoperative photograph shows total removal of the nidus.
 E, F: Intraoperative angiograms of the T12 intercostal artery, before (E) and after (F) occlusion of the feeding arteries, demonstrates the disappearance of the AVF.

現病歴: 1999 年 10 月に歩行障害と腰痛にて発症し、多発性脊髄 AVF の診断で、他院にて L1 2 レベルの病変に対しては NBCA を用いた塞栓術を、S2 レベルの病変に対しては塞栓術後に観血的手術を施行された。術後の左 L1 腰動脈造影と大動脈造影にて病変の消失が確認された。歩行障害と腰痛は改善したが、両下腿と肛門周囲の表在知覚の低下・膀胱直腸障害が残存した¹⁾。

2004 年 9 月頃より再び腰痛と下肢のしびれ感が出現し、徐々に増悪した。2005 年 2 月 18 日、激しい腰痛と胸部絞扼感が出現し、当院を救急受診した。

入院時神経学的所見: 痙性対麻痺 (MMT 5+/5) を認め、

右側 Babinski 反射陽性で右側で足間代を認めた。T6~12 レベルの胸部絞扼感および両下腿と会陰部 (L4 以下) の表在知覚の低下を認め、振動覚は保たれていたが位置覚は低下しており、Romberg 徴候を認めた。また、膀胱直腸障害も認め、肛門反射は減弱していた。

画像所見: MRI では T2 強調画像の高信号域を伴う T12 以下の脊髄の腫大とクモ膜下腔に多数の flow-void を認めた。また、髄液が T1 強調画像・T2 強調画像とも高信号を示し、クモ膜下出血が示唆された (Fig. 1)。脊髄血管撮影にて、左側 T12 肋間動脈、L1 腰動脈および右側 L3 腰動脈よりの 3 本の導入動脈 (右側 L3 腰動脈から

の導入動脈は、左 L1 腰動脈よりの導入動脈と合流して同一の fistula へ流入し、左側 T12 肋間動脈は別の部位から流入)を有し、頭側へ向けて 1 本の導出静脈を有する脊髄 AVF を L1/2 レベルに認め、以前の L1/2 レベルの病変の再発と考えられた (Fig. 2)。また、左 L1 腰動脈よりの導入動脈は、前回塞栓術にて閉塞した血管とは異なる走行をしていた。

入院後経過: 馬尾神経間に介在してクモ膜下腔に存在する脊髄 AVF と診断し、手術治療の方針とした。手術は、全麻挿管後に術中 DSA を行うために右大腿動脈に 5Fr long sheath (25 cm) を留置した後に伏臥位とした。T12 より L2 の椎弓切除を行ったが、硬膜は緊満し暗赤色を呈しており、クモ膜下出血によるものと考えられた。硬膜を切開し、クモ膜にも切開を加えるとキサントクロミーな髄液の流出を認めた。L1/2 の高さで馬尾神経の間に存在する血管塊と脊髄後面の頭側へ向けて走行する太い導出静脈を認め、これらの周囲を注意深く剥離した (Fig. 3A)。血管塊は、黄色に変性して NBCA や血栓で閉塞していると考えられる部分と、血流が保たれている部分が混在していた (Fig. 3A)。血管塊の周囲には多数の血管が認められたが、その中から術中 DSA にて右尾側腹側から血管塊に流入している左 L1 腰動脈よりの導入動脈 (Fig. 3B) と、左頭側背側から流入する左 T12 肋間動脈よりの導入動脈を確認した。術前の血管撮影の所見より、右 L3 腰動脈からの導入動脈は、左 L1 腰動脈からの導入動脈と合流して同一の fistula へ流入していることから、この剥離した 2 本の導入動脈に temporary clip を掛けて microdoppler monitoring を行い、血管塊および導出静脈の arterial spectrum が消失していることを確認した (Fig. 3C)。血管塊の圧は著明に減少し、血管塊および導出静脈は赤色から暗赤色へと変化した。さらに術中 DSA を行い、病変が消失していることを確認後に切断した (Fig. 3E, F)。その後、癒着した馬尾神経を剥離・温存し、頭側へ向かう導出静脈を切断し、血管塊を一塊として摘出した (Fig. 3D)。術後経過は良好で、MRI 上 T2 強調画像の高信号域を伴う脊髄の腫大は速やかに軽快 (Fig. 4) し、対麻痺および胸部絞扼感は改善した。

考 察

Perimedullary AVF では、カテーテルが AVF 近傍に到達でき、正常脊髄の血行が確保できる場合は、塞栓術による根治が得られる。しかし、前脊髄動脈から導入動脈が流入していたり、導入動脈が長く蛇行している場合も多く、AVF 直近までの到達は必ずしも容易ではない。

Fig. 4 Postoperative sagittal T1-weighted (A) and T2-weighted (B) MR imaging obtained two weeks after surgery demonstrates the disappearance of the dilated intradural vessels and the high signal intensity of the conus medullaris.

NBCA は cyanoacrylate 系の液体塞栓物質で、再開通は少ないとされている。本症例は NBCA を用いた塞栓術後に再発したが、L1 腰動脈よりの導入動脈は前回塞栓術にて閉塞した血管とは異なる走行をしており、再開通したとは考えにくい。再発の原因としては、初回の塞栓術が瘻を十分に閉塞しきれていなかった可能性が考えられる。また、初回手術後に脊髄血管撮影を施行していたが、左 L1 腰動脈造影と大動脈造影しか施行されておらず、他の細い導入動脈が存在していた可能性も否定できない。いずれにせよ、初回手術後に症状が改善していたため、これ以上の精査が行われなかったものと推測されるが、塞栓術で完治したと思われても再発することを念頭に置き、注意深い経過観察が必要であると考えられた。

本症例は、初回手術時の診断は Type IVa AVF であったと推測され、再発時には複数の導入動脈と中等度の拡張した導出静脈がみられ、Type IVb AVF と診断された²⁾。Cho ら⁴⁾は、脊髄 AVF に対する治療法を検討し、脊髄背側や脊髄門錐に存在する Type IVa, IVb AVF では手術的治療を推奨している。本症例は、脊髄門錐よりも尾側で馬尾神経間に介在してクモ膜下腔に AVF が存在するため、手術治療による根治が可能であると考えた。術中所見では、AVF は脊髄門錐とは離れて存在し、周囲に癒着した馬尾神経を注意深く剥離することにより、導

入動脈の流入部を確認することができた。また, Iacopino ら⁷⁾や Benes ら³⁾が報告しているが, 術中 DSA を用いて血管塊周囲の多数の血管の中から導入動脈を同定し, さらに temporary clip を掛けて microdoppler monitoring で arterial spectrum の消失や DSA にて病変の消失を確認できたことは, 手術を安全・確実に行ううえで非常に有用であった。

結 語

1) NBCA を用いた塞栓術後に, クモ膜下出血にて再発した脊髄動静脈瘻の 1 例を経験した。

2) 脊髄門錐よりも尾側で馬尾神経間に介在してクモ膜下腔に存在する AVF は, 手術的治療による根治が可能であると考えられた。

3) 術中の microdoppler monitoring や DSA は, 手術を安全・確実に行ううえで非常に有用であった。

4) 塞栓術で完治したと思われても再発することを念頭に置き, 注意深い経過観察が必要と考えられた。

本論文の要旨は第 20 回日本脊髄外科学会(2005 年 6 月, 札幌)において発表した。

謝辞: 本論文の発表にあたり, 貴重な資料をご提供いただきまし

た三田市民病院脳神経外科, 頃末和良先生に深謝します。

文 献

- 1) 秋山英之, 片山重則, 田中浩司, 頃末和良: 脊髄門錐部および仙骨部に発生した多発脊髄動静脈瘻の 1 例, *No Shinkei Geka* **29**: 1177-1181, 2001.
- 2) Anson JA, Spetzler RF: Classification of spinal arteriovenous malformations and implications for treatment. *BNI Quarterly* **8**: 2-8, 1992.
- 3) Benes L, Wakat JP, Sure U, Bien S, Bertalanffy H: Intraoperative spinal digital subtraction angiography: Technique and results. *Neurosurgery* **52**: 603-609, 2003.
- 4) Cho KT, Lee DY, Chung CK, Han MH, Kim HJ: Treatment of spinal cord perimedullary arteriovenous fistula: Embolization versus surgery. *Neurosurgery* **56**: 232-241, 2005.
- 5) Heros RC, Debrun GM, Ojemann RG, Lasjaunias PL, Naessens PJ: Direct spinal arteriovenous fistula: A new type of spinal AVM. Case report. *J Neurosurg* **64**: 134-139, 1986.
- 6) Hida K, Iwasaki Y, Goto K, Miyasaka K, Abe H: Results of the surgical treatment of perimedullary arteriovenous fistulas with special reference to embolization. *J Neurosurg* **90**: 198-205, 1999.
- 7) Iacopino DG, Conti A, Giusa M, Cardali S, Tomasello F: Assistance of intraoperative microvascular Doppler in the surgical obliteration of spinal dural arteriovenous fistula: Cases description and technical considerations. *Acta Neurochir (Wien)* **145**: 133-137, 2003.
- 8) 宮本 享, 永田 泉, 橋本信夫, 菊池晴彦: Spinal perimedullary AVF/AVM の手術, *No Shinkei Geka* **28**: 213-217, 2000.

要 旨

NBCA を用いた塞栓術後に再発した脊髄動静脈瘻の 1 手術例

三宅 茂 藤田 敦史 甲田 将章 齋藤 実 甲村 英二

NBCA を用いた塞栓術後に再発した脊髄動静脈瘻を経験した。症例は 37 歳の男性で, 5 年前に多発性脊髄動静脈瘻の診断で, 他院にて L1/2 レベルの病変に対しては NBCA を用いた塞栓術を, S2 レベルの病変に対しては塞栓術後に観血的手術を施行された。術後の血管撮影では完治と考えられ, 症状も軽快していたが, 腰痛と胸部絞扼感で再発した。手術では馬尾神経の間に存在する血管塊を認め, 一部は NBCA や血栓で閉塞していた。導入動脈を同定・切断し, 血管塊を一塊として摘出した。術中 microdoppler monitoring や DSA が非常に有用であった。また, 塞栓術で完治したと思われても再発することを念頭に置き, 注意深い経過観察が必要と考えられた。

脳外誌 14: 718-722, 2005