蝶形骨小翼部硬膜動静脈瘻に対して Onyx を用いて経動脈的塞栓術を行った 1 例

山中 利之¹⁾, 石井 暁²⁾, 荻野 英治³⁾, 西 秀久²⁾, 清水 寛平²⁾, 新井 大輔⁴⁾,
山尾 幸広²⁾, 西村 真樹¹⁾, 滝 和郎¹⁾

1) 康生会武田病院脳卒中センター・脳神経外科, 2) 京都大学医学部附属病院脳神経外科, 3) 宇治徳洲会病院脳神経外科,
4) 静岡県立総合病院脳神経外科,

Transarterial Onyx Embolization for Dural Arteriovenous Fistula of the Lesser Sphenoid Wing Region : A Case Report

Toshiyuki Yamanaka, M.D.¹⁾, Akira Ishii, M.D.²⁾, Eiji Ogino, M.D.³⁾, Hidehisa Nishi, M.D.²⁾,
Kanpei Shimizu, M.D.²⁾, Daisuke Arai, M.D.⁴⁾, Yukihiro Yamao, M.D.²⁾, Masaki Nishimura, M.D.¹⁾,
and Waro Taki, M.D.¹⁾

1) Stroke Center/Department of Neurosurgery, Koseikai Takeda Hospital, 2) Department of Neurosurgery, Kyoto University Hospital, 3) Department of Neurosurgery, Uji Tokushukai Hospital, 4) Department of Neurosurgery, Shizuoka General Hospital

A 65-year-old man presented with acute headache followed by a week of nuchal and back pain. A computed tomography (CT) scan demonstrated a subarachnoid hemorrhage and varices in the basal cistern and cerebral angiography revealed a dural arteriovenous fistula (dAVF) of the lesser sphenoid wing region. The lesion was treated by endovascular surgery. Onyx (ethylene vinyl alcohol copolymer) was used for transarterial embolization. We review some anatomical and therapeutic features involving dAVF of this region and describe the feasibility and technical notes for the use of Onyx in the treatment of these lesions.

(Received October 20, 2017 ; accepted March 26, 2018)

Key words : dural arteriovenous fistula, lesser sphenoid wing, transarterial embolization, Onyx
Jpn J Neurosurg (Tokyo) 27 : 606-614, 2018

緒 言

硬膜動静脈瘻は、硬膜において動脈から瘻孔を介して静脈系に短絡が生じる疾患である。わが国の報告では海綿静脈洞部に最も多く (46%)、次いで横・S 状静脈洞部に好発する (28%)¹⁾。瘻孔の部位、流出静脈の経路、分布によって多彩な症状を呈するが、臨床的に重要な特徴

のひとつとして頭蓋内出血の原因となりうる事が挙げられる。硬膜動静脈瘻全体の年間出血率は 1.7~1.8% とされるが、出血発症例では年間出血率が 7.4% とよりリスクが高く²⁰⁾、非出血例でも皮質静脈逆流を伴うタイプや静脈拡張・静脈瘤を合併する症例 (Borden Type II/III および Cognard Type IIb/IIa+b/III/IV) は出血リスクが高く、積極的な治療の対象となる¹³⁾。治療法は、根治的

連絡先: 山中利之, 〒600-8558 京都市下京区塩小路通西洞院東入東塩小路町 841-5, 康生会武田病院脳卒中センター・脳神経外科
Address reprint requests to : Toshiyuki Yamanaka, M.D., Stroke Center/Department of Neurosurgery, Koseikai Takeda Hospital, 841-5 Higashishiokoji-cho, Shiokojidori Nishinotoin-higashiiru, Shimogyo-ku, Kyoto-shi, Kyoto 600-8558, Japan

Fig. 1 A-P (A) and lateral (B) left external carotid angiograms. Anterior branches of the middle meningeal artery (black arrow) and the artery of foramen rotundum (white arrow) communicating with the sinus of sphenoid lesser wing (LSWS, black arrowhead). Abnormal dilated uncal vein with varices (asterisk).

治療として、流出静脈遮断術を中心とする直達手術、経静脈的ないし経動脈的アプローチによる血管内治療、定位的放射線治療、およびこれらの治療法の組み合わせが行われる。

今回われわれは、比較的頻度の少ない蝶形骨小翼部の硬膜動静脈瘻に対して、非接着性液体塞栓物質である Onyx (Onyx 18, Medtronic, Irvine, USA) を用いた経動脈的塞栓術により治癒を得た。同部位の血管解剖学的特徴と経動脈塞栓術における注意点などにつき、文献的考察を加えて報告する。

症例提示

患者：65 歳，男性。

主 訴：頭痛

現病歴：農作業中に突然頭痛が出現したが自制内であった。症状の改善がないため、1 週間後に近医を受診した。単純 CT で左 Sylvius 裂および大脳半球脳溝内に淡い膜下出血を認め、脳底槽に直径 15 mm 程度の高吸収域を認め、当院へ紹介となった。

入院時現症：当院入院時、軽度の後頸部痛が残存していたが意識清明で、明らかな神経学的異常を認めなかった。

検査結果：入院当日に脳血管造影検査 (digital subtraction angiography : DSA) を施行した。左外頸動脈撮影の動脈相で左蝶形骨小翼部に左中硬膜動脈 (middle meningeal artery : MMA) および正門孔動脈から流入を受ける

静脈洞が描出され、同静脈洞から拡張した鉤静脈 (uncal vein : UV) が静脈瘤を形成しながら両側の深部静脈へと流出していく所見を認めた (Fig. 1, 3)。また、左内頸動脈撮影では、眼動脈の枝である反回髄膜動脈から同じ蝶形骨小翼部の静脈洞への流入があり、meningohypophyseal trunk (MHT) が流入動脈となって海綿静脈洞外側上部の早期濃染を認めた (Fig. 2, 3)。流出路について、まず上眼静脈への逆流所見はなかった。UV を介して両側の脳底静脈に入った後、患側では一部が Galen 大静脈に合流し、残りは外側中脳静脈や tentorial sinus を経て下小脳半球静脈、下小脳虫部静脈などの小脳半球表面の静脈へと流出し最終的には静脈洞交会へ至っていた。一方、対側でも一部は Galen 大静脈に合流し、残りは上・下錐体静脈洞を経て横静脈洞に注いでいた。また、左大脳半球の皮質静脈は、浅中大脳静脈の海綿静脈洞へ向かう血流が低下し、上・下吻合静脈が主な還流路となっていた (Fig. 2, 3)。造影 CT の画像とも照合し、蝶形骨小翼部の静脈洞に左 MMA、正門孔動脈および反回髄膜動脈から流入を受ける主たる瘻孔が存在し、隣接する海綿静脈洞上外側のコンパートメントへ流出し、大部分が UV を経て深部静脈へと流出していることを確認した。本症例の血管構築をシェーマで示す (Fig. 4, 5)。

入院後経過：経静脈的塞栓術による根治は、静脈瘤への逆行性アプローチが解剖学的に困難であることから断念し、まず経動脈的塞栓術によりできるかぎり流入動脈を閉塞することとした。経動脈的塞栓術により静脈瘤の閉塞が得られなかった場合、治療翌日に開頭術による流

Fig. 2 A-P (A) and lateral (B :arterial phase, C :venous phase) left internal carotid angiogram. Recurrent meningeal artery (black arrow), branching from the left ophthalmic artery, feeding LSWS. The superior lateral compartment of the cavernous sinus is fed by the meningohypophyseal trunk (white arrow). The drainage route draining into the inferior hemispheric vein and Galenic system via the basal vein of Rosenthal (BVR), the lateral mesencephalic vein in the left side (black arrowhead), and into the petrosal sinus, the Galenic system via the peduncular vein and the contralateral BVR in the right side (white arrowhead). The flow of the left superior middle cerebral vein (black double arrow) decreased, so that the cortical veins of the left hemisphere were mostly draining into the vein of Trolard and Labbe (C).

Fig. 3 3D reconstruction of a left external carotid angiogram and a left internal carotid angiogram

出静脈遮断術を行う準備をし、入院7日目に全身麻酔下に経動脈的塞栓術を施行した (Fig. 6)。硬膜動静脈瘻に対する Onyx の使用は適応外使用であるため、プラチナコイルなどの既存デバイスでは根治が困難であることを説明のうえ、患者よりインフォームド・コンセントを得た。

右大腿動脈に 8 Fr シース (ラジフォーカスイントロデューサー IIH, TERUMO, Tokyo, Japan) を留置し、ヘパリン 3,000 単位を投与して ACT (activated clotting time) 196 秒となったことを確認した。左総頸動脈に 8 Fr

ガイディングカテーテル (Launcher 8 F Str 90 cm, Medtronic, US) を誘導し、dimethyl sulfoxide (DMSO) 対応のバルーンカテーテル ScepterXC 4.0 mm×11 mm (MicroVention, TERUMO, Tokyo, Japan) を左 MMA に進めた。逆流防止のため左内頸動脈 (internal carotid artery : ICA) の MHT 起始部にもう 1 本 ScepterC 4.0 mm×11 mm (MicroVention) を留置した。左 MMA の ScepterXC 先端は瘻孔のできるだけ近傍まで誘導し、先端から瘻孔までに分岐がないことを超選択的撮影で確認後 (Fig. 6)、ロードマップ透視下に Onyx の注入を開始

Fig. 4 Contrast enhanced computed tomography, coronal plane, describing fistulous points

Fig. 5 Schema of the main feeders and drainers in this case

SMCV : superficial middle cerebral vein, MMA : middle meningeal artery, DMCV : deep middle cerebral vein, PedV : peduncular vein, UV : uncal vein, RMA : recurrent meningeal artery, SLWS : sinus of sphenoid lesser wing, MHT : meningohipophyseal trunk, CS : cavernous sinus, PP : pterygoid plexus, BVR : basal vein of Rosenthal, SPS : superior petrosal sinus, IPS : inferior petrosal sinus, VG : vein of Galen, LMV : lateral mesencephalic vein, StS : straight sinus, TnS : tentorial sinus, TS : transverse sinus, SS : sigmoid sinus, IHV : inferior hemispheric vein, IVV : inferior vermian vein

した。まず、眼窩側の meningolacrimonal artery に Onyx が流出し、次いで MMA frontal branch 本幹へと流入し始めたため、左 MMA の ScepterXC のバルーンを拡張したが瘻孔への流出は確認できなかった。いったん注入を停止

Fig. 6 Superselctive angiogram from a microcatheter placed in the left middle meningeal artery

Left external carotid angiogram is shown in the lower left box as reference.

して左 MMA の ScepterXC 先端の位置を微調整した。再び注入を開始すると蝶形骨小翼部の静脈洞へ Onyx が入り始め、UV に形成された静脈瘤まで到達した。瘻孔から眼動脈へ Onyx が逆流しないように注意を払いながら注入と停止を繰り返した。術者は主に瘻孔から静脈瘤に入る Onyx 先端を注視し、助手に眼動脈への逆流の有無をチェックするように指示した。反回髄膜動脈への逆流がみられたところで再度注入を停止し、少し待機して再開すると静脈洞内へさらに Onyx が流入し、最終的に静脈瘤内から流出静脈まで Onyx が到達した。合計 4.2 ml 注入したところで撮影を行い、シャントの完全消失を確認した。最終撮影で、反回髄膜動脈から左眼動脈本幹に一部 Onyx が迷入している所見を認めたが、眼動脈の描出自体は良好で網膜中心動脈による濃染像も確認できたため手技を終了した。

術後 3 日目から複数回にわたり左眼に一過性の霧視の訴えが出現したため、APTT で 1.5~2.0 倍を目標とした持続ヘパリン静注と、アスピリン 100 mg、シロスタゾール 200 mg の内服を開始した。術後 8 日目のフォローアップ DSA で網膜中心動脈分岐部の遠位まで血栓化が進行している所見があったが、眼症状は徐々に軽快し、術後 15 日目には症状は消失し、ヘパリンは終了、アスピリンのみ内服継続として最終的に mRS 1 で退院となった。5 カ月後のフォローアップ DSA 時、無症状で眼動脈の血栓化進行所見はなく、硬膜動静脈瘻の再発も認めなかった (Fig. 7)。

Fig. 7 A : Cast view with working angle during treatment. The tip of the microcatheter (white arrow) is located in just distal of the bifurcation of the left middle meningeal artery (MMA) and Onyx is entering not only the shunted pouch but also the meningolacrimonal artery (black arrowhead) and the frontal branch of the MMA (white arrowhead).

B : A left internal carotid angiogram five months after follow-up. Onyx cast is rendered in dark gray color. A portion of the cast is straying into the main trunk of the ophthalmic artery (white arrowhead).

Table 1 Reported literature concerning middle cranial fossa-sphenoid region dural arteriovenous fistula with deep venous drainage

Author (year)	Age/sex	Symptom	Arterial supply		Venous drainage			Treatment
			ICA	ECA	Pattern	Cortical veins	Varix	
Thompson et al. (1994) ²⁴⁾	44/M	Ptosis	MHT	MMA	BVR, SMCV	+	—	TAE + surgery
Ezura et al. (1996) ²⁾	40/M	Global amnesia	OohA	MMA	BVR, SPS, Labbe	+	+	TAE + surgery
Rezende et al. (2006) ¹⁶⁾	45/M	Headache	OphA, ILT	MMA, AMA, AFR	BVR, SMCV, CS, SPS	+	+	TAE (Onyx)
Tanaka et al. (2012) ²³⁾	61/M	Quadriplegia	MHT	MMA	BVR, SMCV	+	+	Surgery
Shi et al. (2013) ¹⁹⁾	62/M	Homonymous hemianopsia	OphA, MHT	MMA, AMA, AFR	BVR, SMCV, Trolard, SSS	+	+	TAE + TVE
Osuna et al. (2013) ¹⁵⁾	55/M	Hemianopsia	OphA	MMA	ATV, BVR	+	+	Surgery
Fukuda et al. (2014) ⁴⁾	58/M	Dizziness	OphA, MHT, ILT	MMA, AMA, AFR	UV, BVR, SMCV	+	+	TAE + TVE
Watanabe et al. (2015) ²⁶⁾	69/M	Incidental	OphA	MMA	ATV, BVR, SMCV	+	+	Surgery
Nakajima et al. (2017) ¹²⁾	71/M	Hemisensory disturbance	OphA, ILT	MMA	BVR, LMCV	—	+	Surgery
Our case	65/M	Subarachnoid hemorrhage	OphA, MHT	MMA, AFR	UV, CS, BVR, SPS	—	+	TAE (Onyx)

AMA : accessory meningeal artery, AFR : artery of foramen rotundum, ATV : anterior temporal vein, BVR : basal vein of Rosenthal, CS : cavernous sinus, ECA : external carotid artery, ICA : internal carotid artery, ILT : inferolateral trunk, M : male, MHT : meningohypophyseal trunk, MMA : middle meningeal artery, OphA : ophthalmic artery, SMCV : superficial middle cerebral vein, SPS : superior petrosal sinus, SSS : superior sagittal sinus, TAE : transarterial embolization, TVE : transvenous embolization, UV : uncal vein

考 察

① 中頭蓋窩-蝶形骨部の硬膜動静脈瘻

中頭蓋窩の蝶形骨小翼・大翼部に硬膜動静脈瘻が発生することはまれである。頭蓋内硬膜動静脈瘻の 323 症例を後方視的に検討した報告では、中頭蓋窩の蝶形骨小翼・大翼部に生じたものは 11 症例 (3.4%) であった¹⁹⁾。また、別の報告では蝶形頭頂静脈洞に発生したものが 260 例中 5 例 (1.9%) と報告されており⁵⁾、頻度は硬膜動静脈瘻全体の 2~3% と推定される。ほぼ全例において MMA が主たる流入動脈となっており、その他の流入動脈として副硬膜動脈、正円孔動脈、中側頭動脈、前耳介動脈などの外頸動脈系硬膜枝、inferolateral trunk や MHT、反回髄膜動脈などの内頸動脈系吻合枝が関与する。

臨床症状や病態の把握において、皮質静脈への逆流や深部静脈への流出の有無、周辺の静脈洞との関係が重要である。蝶形骨小翼・大翼部は浅中脳静脈や深中脳

静脈の流入部であり、同部位の硬膜動静脈瘻ではこれらの静脈への逆流が生じうる。静脈洞以外の皮質静脈や深部静脈に逆流が生じると、静脈圧亢進とともに血管の拡張・蛇行、瘤形成を合併しやすく、静脈性梗塞や頭蓋内出血のリスクが高まると考えられている。また、中頭蓋窩の硬膜動静脈瘻は海綿静脈洞へ流出することも多く、上眼静脈への逆流による眼症状など、海綿静脈洞部の硬膜動静脈瘻と類似した症状を呈することがある。Shi ら¹⁹⁾は、蝶形骨小翼部に発生する硬膜動静脈瘻は、海綿静脈洞へ流出することが多いため臨床的には海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻と類似し、眼症状などから逆流が深刻になる前に比較的早期に発見されやすく、一方、大翼部に発生するものはいわゆる海綿静脈洞付近の硬膜上の流出経路を主とするため特徴的な症状が出現せず、結果的に出血によって発症することが多いと考察している。

蝶形骨部硬膜動静脈瘻における深部静脈への流出については、報告例の 10% 程度にみられている¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁹⁾²³⁾²⁶⁾(Table 1)。深部静脈系と中頭蓋窩-蝶形骨部の静脈洞と

の解剖学的つながりについては、特発性海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の DSA 検討から、本症例のような UV や深中大脳静脈を介して海綿静脈洞上外側コンパートメントから流出する superolateral type、上錐体静脈洞と錐体静脈を経由する posterolateral type、架橋静脈や anterior pontomesencephalic vein を経由する posteromedial type といった経路があると報告されている⁹⁾¹⁰⁾。経動脈的塞栓術にてこれらの深部静脈を不用意に閉塞すると、正常還流を障害する可能性があるため、術前の慎重な読影がきわめて重要である。

② 治療法について

わが国の脳卒中治療ガイドライン 2015 では「症候性または脳血管撮影において脳皮質静脈への逆流を認める症例」で積極的治療を考慮するとされている¹³⁾。本症例は出血発症例であるため治療適応について議論はないが、仮に無症候性で偶発的に発見された場合、深部静脈への流出を主な流出経路とする症例での治療方針についてガイドライン上の記載はない。ただし、深部静脈への流出を伴う海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻 58 例の検討で、基底核や脳幹、小脳の出血や静脈性梗塞・うっ血が 5% で認められたとの報告があり²¹⁾、無症候性であっても深部静脈への流出が認められる場合は積極的治療を考慮してよいと考えられる²⁶⁾。

治療法については開頭による直達手術、血管内治療、放射線治療およびこれらの組み合わせで行われるが、手術と血管内治療が中心的役割を果たす。近年は医療器材の進歩により血管内治療の成績が向上し、以前には開頭手術が第 1 選択であった部位の硬膜動静脈瘻でも血管内治療による根治が得られることが増えている⁵⁾。中頭蓋窩の硬膜動静脈瘻についても、初回から直達術を選択する報告もある¹²⁾²³⁾²⁶⁾が、最近では血管内治療を初回治療として行い、閉鎖が不十分な場合に後療法として直達術や放射線治療を追加したというものが多い¹⁶⁾¹⁹⁾。放射線治療については、1998 年に Guo ら⁶⁾がガンマナイフによる、2001 年に Friedman ら³⁾がリニアックによる頭蓋内硬膜動静脈瘻の良好な治療成績を報告して以来、主に血管内治療後に残存する硬膜動静脈瘻を対象とした治療オプションとして選択されている¹⁸⁾。

直達術の長所は静脈の色調を直視下に観察したり、ドップラーを使用したりしながら治療を行うことができ、術中血管造影やインドシアニンググリーンを用いた蛍光観察で血流動態の変化を確認することもでき、治療効果の確実性が高いという点である。また、中頭蓋窩-蝶形骨部のアプローチは一般脳神経外科医の多くが習熟して

いる手術手技であることも重要な点である²⁶⁾。

放射線治療について、硬膜動静脈瘻に奏効する詳細な原理は未解明であるが、動静脈奇形においては 20 Gy 以上の高線量照射により異常血管の内皮細胞障害が惹起され、平滑筋の増殖、ヒアリン・カルシウム・コラーゲンの沈着により異常血管内腔の狭窄、血栓化が生じて閉塞に至ることが知られており、硬膜動静脈瘻においても同様のメカニズムであると考えられている¹⁸⁾。その性質上、完全閉塞までには照射後年単位の時間を要し、海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻で照射後閉塞率が 2 年後 75%、5 年後 90%、非海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻では 5 年後 75% との報告がある²⁷⁾。問題点としては、閉塞が得られるまでの出血リスクと放射線誘発浮腫、脱毛、確率は低い放射線血管障害、晩期放射線障害などが挙げられる。

③ 本症例について

海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻であれば経静脈的にプラチナコイルなどで sinus packing を行う方法が主流であるが、病変部の構造が複雑であったり、海綿静脈洞内部に隔壁があったりすると瘻孔にうまくカテーテルを誘導できなかったり、閉塞が不完全になったりといった可能性があり、特に不完全な静脈洞の閉塞は血流動態の予期せぬ変化によって皮質静脈逆流増加や深部静脈への流出といったより危険な変化を起こすリスクがある²²⁾。本症例では患側で海綿静脈洞内側前方の上眼静脈への逆流がみられず、下錐体静脈洞の描出もなかったことから、それらと瘻孔の存在するコンパートメントとの間には隔壁が存在する可能性が示唆され、経静脈的アプローチは困難であると判断した。

一方で、中頭蓋窩-蝶形骨部の硬膜動静脈瘻について MMA を経由した経動脈的アプローチで液体塞栓物質を流入動脈から瘻孔に注入して流出静脈側まで到達させることで病変部を閉塞させる方法²⁵⁾があり、単独でも良好な成績が報告されている⁷⁾²²⁾。経動脈的アプローチの短所は、塞栓物質が吻合路を介して重要な正常血管へ迷入したり、病変部を超えて遠位の正常血管を塞栓したりする合併症である。これらの合併症を予防するため、バルーンで眼動脈起始部などの内頸動脈を閉塞させて逆流を阻止する、注入用カテーテルにバルーンカテーテルを選択し、注入時に拡張させて血流量を落とし液体塞栓物質のコントロールをよくするといった工夫が行われている⁷⁾¹⁴⁾。

本症例では左 MMA が流入動脈として容易にアクセス可能であり、海綿静脈洞側からの経静脈的アプローチは困難が予想されたことから、経動脈的アプローチによる

瘻孔閉鎖術を初回治療として行い、効果が不十分であった場合に直達術を追加する方針を立てた。眼動脈とMHTからの血流を一時遮断する目的で、両者の起始部にバルーンプロテクションを行う方法を検討したが、システムが煩雑となるためMHTの起始部にのみバルーンを留置した。

Onyxはエチレンビニルアルコール (EVOH) のコポリマーを有機溶媒であるDMSOに溶解したもので、溶媒であるDMSOが血中で拡散していく過程でEVOHが析出し固化する液体塞栓物質である⁸⁾。わが国では2008年より動静脈奇形の塞栓術について保険承認されている。従来主流であったシアノアクリル系液体塞栓物質のNBCA (n-butyl cyanoacrylate) が接着性で重合反応が生じると血管壁やカテーテルに接着することがあり、注入後はただちにカテーテルを抜去する必要があるのに対して、Onyxは非接着性で間欠的に時間をかけて注入することができ、その特性を活かしたplug and push techniqueが効果的な塞栓を行うにあたって重要である¹²⁾。また、本症例のようにバルーンカテーテルから注入を行うことでより安定したplug効果を得ることができるpressure cooker techniqueの有用性も報告されている¹⁾。

中頭蓋窩-蝶形骨部の硬膜動静脈瘻に対してOnyxを使用した経動脈的塞栓術の報告は2006年のRezendeら¹⁶⁾が最初で、Shiら¹⁹⁾もOnyxを使用した経動脈的塞栓術単独で良好な結果であった4例を報告している。同部位の硬膜動静脈瘻に対して効果的な治療法であると考えられるが、予期せぬ血管へのOnyx迷入に対する対策が重要である。Trivelatoら²⁵⁾はOnyxを使用した経動脈的アプローチ単独治療で良好な成績を保つポイントのひとつとして、Onyx注入用カテーテルを瘻孔内まで進めるか、少なくとも手前でwedgeさせることを挙げている。本症例では、瘻孔までOnyx注入用カテーテルを進めることが困難であったため、より安定したplug効果を得るためにScepterXCのバルーンを用いOnyxを注入した。術中、眼動脈へのOnyx逆流には細心の注意を払っていたが、術前検査ではわずかにしか描出されなかった眼動脈との吻合枝にOnyxの迷入をきたし、術後にOnyxに接した部位に血栓が出現し一過性視症状の原因となった。たとえ網膜中心動脈へのOnyx逆流がなくとも、眼窩内血管への逆流があれば視症状の原因となりうることに注意する必要がある。

今回、蝶形骨小翼部に発生した硬膜動静脈瘻に対してOnyxを用いて経動脈的瘻孔閉鎖術を行った1例を経験した。本症例が出血発症であったように、深部静脈への流出は出血や静脈性梗塞のリスクが高く積極的治療を考

慮すべき所見である。また、硬膜動静脈瘻に対するOnyxを用いた経動脈的塞栓術は、わが国では保険未収載であるが、すでに海外で報告があるように中頭蓋窩-蝶形骨部硬膜動静脈瘻に対しても効果的な治療オプションである。安全かつ効果的に行うためには解剖学的知識と術前の十分な読影に加えて、Onyxの特性を理解し適切な逆流対策を行うことが重要である。

COIについて

著者全員は日本脳神経外科学会へのCOI自己申告の登録を完了しています。本論文に関して開示すべきCOIはありません。

文 献

- 1) Chapot R, Stracke P, Velasco A, Nordmeyer H, Heddier M, Stauder M, Schooss P, Mosimann PJ: The pressure cooker technique for the treatment of brain AVMs. *J Neuroradiol* **41**: 87-91, 2014.
- 2) Ezura M, Takahashi A, Mizoi K: Dural arteriovenous shunts involving the sphenoparietal sinus: a case report. *Interv Neuroradiol* **2**: 223-228, 1996.
- 3) Friedman JA, Pollock BE, Nichols DA, Gorman DA, Foote RL, Stafford SL: Results of combined stereotactic radiosurgery and transarterial embolization for dural arteriovenous fistulas of the transverse and sigmoid sinuses. *J Neurosurg* **94**: 886-891, 2001.
- 4) Fukuda H, Miyake K, Kunieda T, Murao K: Endovascular treatment of sphenoid wing dural arteriovenous fistula with pure cortical venous drainage. *J Stroke Cerebrovasc Dis* **23**: 1730-1735, 2014.
- 5) Gross BA, Albuquerque FC, Moon K, McDougall CG: Evolution of treatment and a detailed analysis of occlusion, recurrence, and clinical outcomes in an endovascular library of 260 dural arteriovenous fistulas. *J Neurosurg* **126**: 1884-1893, 2017.
- 6) Guo WY, Pan DH, Wu HM, Chung WY, Shiau CY, Wag LW, Chiou HJ, Yen MY, Teng MM: Radiosurgery as a treatment alternative for dural arteriovenous fistulas of the cavernous sinus. *AJNR Am J Neuroradiol* **19**: 1081-1087, 1998.
- 7) Huo X, Li Y, Jiang C, Wu Z: Balloon-assisted endovascular treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas. *Turk Neurosurg* **24**: 658-663, 2014.
- 8) Jahan R, Murayama Y, Gobin YP, Duckwiler GR, Vinters HV, Viñuela F: Embolization of arteriovenous malformations with Onyx: clinicopathological experience in 23 patients. *Neurosurgery* **48**: 984-997, 2001.
- 9) Kiyosue H, Mori H, Sagara Y, Hori Y, Okahara M, Nagatomi H, Abe T: Basal cerebral venous drainage from cavernous sinus dural arteriovenous fistulas. *Neuroradiology* **51**: 175-181, 2009.
- 10) Kobkitsuksakul C, Jiarakongmun P, Chanthanaphak E, Pongpech S: Radiographic evaluation and clinical implications of venous connections between dural arteriovenous fistula of the cavernous sinus and cerebellum and the pontomedullary venous system. *World Neurosurg* **84**: 1112-1126, 2015.
- 11) 桑山直也: 硬膜動静脈瘻-横静脈洞部. *Clinical Neurosci* **23**: 1141-1145, 2005.
- 12) Nakajima H, Ishiguro T, Terada A, Komiyama M: Dural arte-

- riovenous fistula of the sinus of the lesser sphenoid wing presenting with pontine hemorrhage. *World Neurosurg* **98**: 871. e17-871. e21, 2017.
- 13) 日本脳卒中学会 脳卒中ガイドライン委員会編：脳卒中治療ガイドライン2015. 東京，協和企画，2015.
 - 14) 奥村浩隆，水谷 徹：脳動静脈奇形に対する脳血管内治療—新塞栓物質 Onyx の功罪—。昭和学会誌 **74**: 504-512, 2014.
 - 15) Osbun JW, Kim LJ, Spetzler RF, McDougall CG: Aberrant venous drainage pattern in a medial sphenoid wing dural arteriovenous fistula: a case report and review of the literature. *World Neurosurg* **80**: e381-e386, 2013.
 - 16) Rezende MT, Pötin M, Mounayer C, Spelle L, Abud DG, Moret J: Dural arteriovenous fistula of the lesser sphenoid wing region treated with Onyx: technical note. *Neuroradiology* **48**: 130-134, 2006.
 - 17) San Millán Ruiz D, Fasel JH, Rüfenacht DA, Gailloud P: The sphenoparietal sinus of breschet: does it exist? An anatomic study. *AJNR Am J Neuroradiol* **25**: 112-120, 2004.
 - 18) 芹澤 徹，樋口佳則，永野 修，小南修史，平井達夫，小野純一，佐伯直勝：脳動静脈奇形と硬膜脳動静脈瘻に対する定位放射線治療の役割。脳外誌 **22**: 917-926, 2013.
 - 19) Shi ZS, Ziegler J, Feng L, Gonzalez NR, Tateshima S, Jahan R, Martin NA, Viñuela F, Duckwiler GR: Middle Cranial Fossa Sphenoidal Region Dural Arteriovenous Fistulas: Anatomic and Treatment Considerations. *Am J Neuroradiol* **34**: 373-380, 2013.
 - 20) Söderman M, Pavie L, Edner G, Holmin S, Andersson T: Natural history of dural arteriovenous shunts. *Stroke* **39**: 1735-1739, 2008.
 - 21) Suh DC, Lee JH, Kim SJ, Chung SJ, Choi CG, Kim HJ, Kim CJ, Kook M, Ahn HS, Kwon SU, Kim JS: New concept in cavernous sinus dural arteriovenous fistula: correlation with presenting symptom and venous drainage patterns. *Stroke* **36**: 1134-1139, 2005.
 - 22) 竹上徹郎，今井啓輔，梅澤邦彦，木村聡志，荻田庄吾，濱中正嗣，池田栄人：Fistulous point に対する selective transarterial embolization が有効であった海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例。JNET **6**: 51-55, 2012.
 - 23) Tanaka T, Kato N, Arai T, Hasegawa Y, Abe T: Surgical treatment of a sylvian-middle fossa dural arteriovenous fistula draining into the basal vein of rosenthal with frontotemporal craniotomy. *J Stroke Cerebrovasc Dis* **21**: 333-337, 2012.
 - 24) Thompson BG, Doppman JL, Oldfield EH: Treatment of cranial dural arteriovenous fistulae by interruption of leptomeningeal venous drainage. *J Neurosurg* **80**: 617-623, 1994.
 - 25) Trivelato FP, Abud DG, Uihôa AC, Menezes Tde J, Abud TG, Nakiri GS, Colli BO, Gusmão SN, Rezende MT: Dural arteriovenous fistulas with direct cortical venous drainage treated with Onyx: a case series. *Arq Neuropsiquiatr* **68**: 613-618, 2010.
 - 26) Watanabe J, Maruya J, Nishimaki K: Surgical treatment of a dural arteriovenous fistula in the sphenoid wing with a unique drainage pattern through the basal vein of rosenthal. *NMC Case Rep J* **2**: 88-92, 2015.
 - 27) Wu HM, Pan DH, Chung WY, Guo WY, Liu KD, Shiau CY, Wang LW, Chen SJ: Gamma Knife surgery for the management of intracranial dural arteriovenous fistulas. *J Neurosurg* **105** Suppl: 43-51, 2006.

要 旨

蝶形骨小翼部硬膜動静脈瘻に対して Onyx を用いて経動脈的塞栓術を行った1例

山中 利之 石井 暁 荻野 英治 西 秀久 清水 寛平
新井 大輔 山尾 幸広 西村 真樹 滝 和郎

症例は65歳の男性。突然の頭痛で発症し，頭部CTでくも膜下出血と静脈瘤が認められ，脳血管造影検査で蝶形骨小翼部の硬膜動静脈瘻と診断された。血管内治療による Onyx を用いた経動脈的塞栓術によりシャントの閉塞を得た。蝶形骨部に生じる硬膜動静脈瘻の解剖学的特徴と経動脈的塞栓術における注意点，および Onyx を用いた治療について文献的考察を含めて報告する。

脳外誌 **27**: 606-614, 2018

Onyx を用いた TAE は dAVF の新たな治療オプションとなる

広南病院血管内脳神経外科 松本康史

中頭蓋窩の蝶形骨小翼・大翼部に硬膜動静脈瘻 (dAVF) が発生することはまれ (全 dAVF の 2~3%) であるが, 本症例のように出血発症であったり, 非出血例であっても皮質静脈や深部静脈への逆流がある場合には積極的な治療が考慮される. dAVF の治療法として, 直達手術, 定位的放射線治療, 経静脈的塞栓術 (TVE), 経動脈的塞栓術 (TAE) があるが, 近年では TVE や TAE を主体とした血管内治療の有用性が多く報告されている. 本症例は出血発症であり, 閉塞に時間がかかる定位的放射線治療は不向きと考えられ, 蝶形骨小翼部の dAVF への経静脈アプローチは困難と判断され, TAE が選択されてい

る. TAE で dAVF を根治させる場合には流入動脈からシャント部を越えて流出静脈まで到達させる必要がある. TAE に用いられる液状塞栓物質として NBCA (n-butyl cyanoacrylate) と Onyx (Medtronic, Irvine, USA) があるが, 静脈側まで到達させるためには非接着性の Onyx が選択されることが多い. 本症例では, 術前の十分な解剖学的検討に基づき, 高い技術力による TAE が行われ, Onyx 迷入により誘発された術後の血栓症に対しても適切な処置がとられている. TVE 困難な dAVF に対しての Onyx を用いた TAE が, dAVF 治療の新たなオプションとなる可能性を示した貴重な症例報告である.