海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻術後および医原性S状静脈洞閉塞後に新規形成された多発硬膜動静脈瘻の1例

辻 博文, 後藤 正憲, 箸方 宏州, 岩崎 孝一

田附興風会医学研究所北野病院脳神経外科

De Novo Multiple Cerebral Dural Arteriovenous Fistulas following Treatment of Cavernous Sinus Dural Arteriovenous Fistula and Iatrogenic Occlusion of Sigmoid Sinus : A Case Report

Hirofumi Tsuji, M.D., Masanori Goto, M.D., Hirokuni Hashikata, M.D., Ph.D., and Koichi Iwasaki, M.D., Ph.D.

Department of Neurosurgery, Kitano Hospital, the Tazuke Kofukai Medical Research Institute

We report an unusual case with de novo development of anterior condylar confluence dural arteriovenous fistula (ACC-DAVF) and transverse-sigmoid (TS) DAVF one year after endovascular treatment of cavernous sinus (CS) DAVF. A 74-year-old female was admitted to our hospital after presenting with headache. The diagnostic magnetic resonance imaging and digital subtraction angiography (DSA) revealed CS-DAVF (Borden type III). Transvenous embolization (TVE) for this lesion failed, but DSA at two weeks after the intervention showed disappearance of the CS-DAVF and occlusion of the ipsilateral sigmoid sinus. However, one-year follow-up DSA revealed de novo ipsilateral ACC-DAVF (Borden type I) and TS-DAVF (Borden type II). TVE and transarterial embolization (TAE) were successfully performed for the TS-DAVF. No recurrence was seen at the one-year follow-up.

After treatment of a DAVF, especially combined with iatrogenic occlusion of sigmoid sinus, de novo DAVFs may occur at other sites. Thus, careful radiological follow-up is recommended.

(Received February 27, 2019 ; accepted July 23, 2019)

Key words : dural AVF, de novo, sinus occlusion, iatrogenic

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 29 : 207-214, 2020

はじめに

Dural arteriovenous fistula (DAVF) の塞栓術後, 新規 DAVF をきたすことはまれである. 今回, transvenous embolization (TVE) による治療が不成功に終わった cavernous sinus DAVF (CS-DAVF) が医原性の静脈洞閉塞を伴って消失し, その後の経過で新たに同側の anterior condylar confluence DAVF (ACC-DAVF) および transvers

sigmoid sinus DAVF (TS-DAVF) を認めたきわめてまれな症例を経験したので文献的考察を加えて報告する.

症例提示

症例は 74 歳女性. 頭痛を主訴に当院救急外来を受診した際の頭部 MRI で, 皮質静脈への逆流を伴う CS-DAVF の疑いで精査加療目的に入院となった. 高血圧,

連絡先: 辻 博文, 〒530-8480 大阪市北区扇町 2-4-20 公益財団法人田附興風会医学研究所北野病院脳神経外科

Address reprint requests to: Hirofumi Tsuji, M.D., Department of Neurosurgery, Kitano Hospital, the Tazuke Kofukai Medical Research Institute, 2-4-20 Ohgimachi, Kita-ku, Osaka-shi, Osaka 530-8480, Japan

Fig. 1 Preoperative magnetic resonance angiography (MRA)

A, B : Time-of-flight MRA.

C : Maximum intensity projection MRA shows hyperintense signals in the left cavernous sinus and left superficial middle sylvian vein (arrow).

脂質異常症と子宮筋腫での治療歴以外に特記すべき既往歴や家族歴は認めなかった。入院時には、眼球突出、眼球結膜充血や浮腫、眼球上部の血管雑音やその他の神経脱落所見は認めなかった。

頭部 MRI では DWI/FLAIR にて脳実質内の梗塞・浮腫性変化や出血性変化は認めず、頭部 MRA 元画像では CS 内および同側の superficial middle sylvian vein (SMCV) 内に高信号を認めた。対側 CS や inferior petrosal sinus (IPS) の描出は認めなかった (Fig. 1)。DSA で同側 inferolateral trunk, middle meningeal artery (MMA) petrosal branch, accessory meningeal artery (AMA), artery of foramen rotundum (AFR) を feeder として左側 CS 内側下面に shunt pouch を形成し、SMCV から vein of Trolard, vein of Labbe へのみ還流する CS-DAVF を認め、Border type 3 と診断した (Fig. 2)。治療として局所麻酔下での TVE を計画した。デバイスには 6 Fr system を選択し Tempo-4 (Cor-dis, FL, USA), Radifocus Guidewire 0.035" (Terumo, Tokyo, Japan) を用いて internal jugular vein (IJV) へアプローチし、マイクロカテーテルとして Excelsior SL-10 (Stryker, MI, USA) および ASAHI CHIKAI (ASAHI

INTECC, Aichi, Japan) を使用した。両側の IPS と同側 superior petrosal sinus (SPS) からのカテーテルの誘導を試みたが、病変に到達できず断念した。非優位側の IJV であり、対側に比べ径は小さかったが終了前の確認撮影では明らかな左 S 状静脈洞の血流低下、狭窄、閉塞などは指摘されなかった。複数のアプローチを施行したこともあり、手術時間は 262 分、透視時間は 104 分、造影剤は計 110 ml を要し、今回の手技中に要した総線量は interventional reference point で約 2.7 Gy であった。幸い脱毛やその他皮膚症状を含め明らかな被曝による合併症は認めず新規の神経学的異常所見も認めなかった。高齢であり本人が開頭手術に拒否を示したことから、および TVE 終了前の外頸動脈撮影にて MMA から比較的安全に塞栓が可能と考えられる feeder が確認されたことから、次なる治療選択肢として transarterial embolization (TAE) を行う方針とした。しかし、2 週間後の TAE 施行前の確認撮影では、CS-DAVF の消失とともに同側の S 状静脈洞の閉塞所見を認めた (Fig. 3)。頻回の画像フォローアップにて経過観察の方針とした。

その後神経学的に異常はなかったが、1 年後に施行し

Fig. 2 Preoperative angiograms

- A, B :** Left common carotid angiogram showed cavernous sinus dural arteriovenous fistula (CS-DAVF) (white arrow).
C, D : Lateral view of the left external carotid angiogram revealed CS-DAVF fed by a petrosal branch of the left middle meningeal artery, accessory meningeal artery, and artery of foramen rotundum. The shunt point was located at the bottom of the cavernous sinus (black arrow), draining to the vein of Trolard and Labbe via left superficial middle sylvian vein (white arrowheads).

た頭部 MRI で同側の ACC および TS に新たな異常血流信号の出現を認めた。DSA では、ACC-DAVF (Borden type I) および TS-DAVF (Borden type II) を確認した。ACC-DAVF は、occipital artery (OA) から分岐する ascending pharyngeal artery (APA) を feeder として ACC にシャントを形成し、IJV へと流出していた。TS-DAVF は、OA, MMA と posterior meningeal artery を feeder として TS に広範なシャントを形成し、対側 TS へ逆行性に還流するとともに vein of Labbe, SPS から petrosal vein へ流出する retrograde leptomeningeal venous drainage を認めた。CS-DAVF の再発は認めなかった (Fig. 4)。TS-DAVF に対して TVE と TAE を施行し完全塞栓し得た (Fig. 5)。術後の頭部 MRI では、未治療の ACC-DAVF 以外の異常血流信号は消失しており、術後 1 年時点で MRI および DSA

上 CS-DAVF および TS-DAVF の再発は認めていない。

考 察

CS-DAVF 治療後ないし医原性静脈洞塞栓術後の de novo DAVF はこれまでに報告はあるが、今回の症例は両方の病態が重なっており、より de novo DAVF 発生を危惧したフォローアップが必要であった点が特徴的であるといえる。

多発 DAVF は全 DAVF の 6~9% を占めるまれな病態である⁷⁾。これまでの報告の中で多発 DAVF は同時期に多発する synchronous DAVFs と、DAVF の治療後新規に別部位に発症する metachronous DAVFs に分類されてきた²⁾⁷⁾⁹⁾¹⁰⁾²³⁾。Ha ら⁹⁾の報告では 179 症例中、多発 DAVFs

Fig. 3 Left common carotid angiograms

- A, B :** Anteroposterior and lateral views show disappearance of the cavernous sinus dural arteriovenous fistula.
C, D : Comparison of angiograms obtained before (C) and after (D) the transvenous procedure. The venous phase shows occlusion of the left sigmoid sinus (white arrowheads).

が14例(7.8%)みられ,そのうち metachronous DAVFs は7例(3.9%)とされている。Metachronous DAVFs を合併する時期としては,初回治療後4~92 カ月と報告によりさまざまであり,必要な経過観察期間に関する明確なエビデンスは存在しない。渉猟するかぎり CS 治療後に続発する de novo DAVF の症例は,11 例の報告が存在した^{8)9)12)~14)16)~18)25)}(Table 1)。Guo ら⁷⁾は,その総説の中で多発 DAVF の病態として静脈洞血栓症,血管新生因子,血行動態の変化,内因性因子などを挙げており,特に CS-DAVF 後 IJV に de novo DAVF を合併した Kubota ら¹⁴⁾の例を挙げ治療後にシャント血流還流・血行動態が変化し静脈圧が上昇することで de novo DAVF をきたす可能性があるため注意を要すると述べている。

医原性静脈洞閉塞後の de novo DAVF としては渉猟するかぎり14例の報告が確認できた⁵⁾⁶⁾⁹⁾¹³⁾¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁹⁾²⁰⁾。(Table 2) Ha ら⁹⁾は多発 DAVF において71.4%という高い確率で静脈洞閉塞がみられたとしている。これまでの報告の中で動物実験において静脈高血圧が後天的な

DAVF の形成に深く関わっていることは示唆されており²¹⁾²²⁾, Fudaba ら⁵⁾は舌癌に対する頸部廓清の際に IJV の結紮に伴い発生した de novo DAVF の報告の中で静脈洞閉塞による静脈高血圧が潜在的な硬膜上のシャントを開き DAVF 形成のトリガーになったとするとともに,局所的な hypoperfusion が血管新生因子の発現を促すことで新たな channel が形成される可能性を指摘している。

本症例において初回 TVE を試みた後に静脈洞閉塞および CS-DAVF の消失をきたした要因として,静脈洞内操作による物理的な血管内壁への影響と造影剤による影響が考えられる。本症例では CS への IPS・SPS・inter-cavernous sinus を介したアプローチが困難であり,その結果通常の TVE に比して複数回の静脈洞内操作および静脈内造影を要している。治療中の出血性合併症や閉塞・狭小化などは認めなかったが,物理的な損傷に関する手技中の問題点として,IPS を探るため複数回の 0.035" ワイヤによる静脈洞内操作を要したことや,同側 SPS へアプローチするため 4 Fr カテーテルを S 状静脈

Fig. 4 Follow-up magnetic resonance imaging/digital subtraction angiography one year after procedure

- A, B :** Time-of-flight magnetic resonance angiogram shows hyperintense signals in the anterior condylar confluence (ACC) (white arrowhead) and transverse-sigmoid sinus (TS) (white arrows).
- C :** Lateral view from the left vertebral angiogram shows transverse-sigmoid sinus dural arteriovenous fistula (DAVF) fed by the posterior meningeal artery (black arrow).
- D, E :** Lateral view of the left external carotid angiogram showed anterior condylar confluence DAVF fed by the ascending pharyngeal artery with antegrade drainage into the internal jugular vein (Borden type I) (white arrowheads) and TS DAVF fed by the occipital artery and middle meningeal artery (white arrows) with retrograde drainage into the vein of Labbe (asterisk), petrosal vein and contralateral TS sinus (Borden type II).

洞内まで誘導した操作などが静脈洞内壁への物理的損傷をきたし静脈洞内血栓形成にも寄与した可能性が考えられる。また、内因性要素として非優位側でありS状静脈洞からIJVにかけて径が小さかったことも静脈洞閉塞へつながった要因として考えられるだろう。

Al-Afif ら¹⁾は DAVF が自然消失する機序としてこれまでの報告をもとに血管造影検査、出血、静脈洞内血栓形成、閉塞静脈洞の再開通の4つを提唱している。造影剤による影響に関して低浸透圧非イオン性造影剤であるiohexolによる血管内皮の形態的な変化や線溶系抵抗性の血栓形成などの報告がみられる³⁾¹¹⁾。造影剤によるこうした影響がCS-DAVFの消失や物理的な損傷とも相まって静脈洞内血栓の形成に関与した可能性は否定できないと考える。

また、手術時間延長に伴う被曝の影響に関して、残念ながら渉猟するかぎり脳血管撮影中の被曝によるDAVFの消失や静脈洞閉塞に言及する文献は確認されなかつ

た。DAVF に対して行われる定位放射線治療の知見として、Chen ら⁴⁾は総説の中で、定位放射線治療による奏効率は63%であり、使用された平均線量は20.4 Gy (15.6～40)であったとしている。また、Wang ら²⁴⁾の単一施設報告では平均15.8 Gyを使用し完全閉塞は47%で得られ、閉塞するまでの平均期間は14.3カ月であったと報告している。これらを合わせて考えても今回の2.7 Gyという被曝量を2週間後にDAVFの消失および静脈洞閉塞をきたした要因として挙げることは困難であろう。

本症例はTVE施行後にCS-DAVFの消失およびS状静脈洞閉塞をきたし、metachronous DAVFsを呈した初めての報告である。今回の症例のようにDAVFの治療後に静脈洞閉塞を伴う場合には、de novo DAVFの合併リスクが高いと予想され、慎重かつ頻回の画像フォローが必要になると考えられる。

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

Fig. 5 Post-transvenous embolization/TAE digital subtraction angiography findings

A : Lateral craniogram shows a coil seated in the superior petrosal sinus and transverse-sigmoid sinus (TS).

B, C : Lateral view of the external carotid and vertebral angiograms reveal complete obliteration of the TS dural arteriovenous fistula (DAVF) and untreated anterior condylar confluence DAVF (Borden type I) (white arrowheads).

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) Al-Afif S, Nakamura M, Gotz F, Krauss JK : Spontaneous closure of a dural arteriovenous fistula. *J Neurointerv Surg* **7** : e28, 2015.
- 2) Bai Y, He C, Zhang H, Ling F : De novo multiple dural arteriovenous fistulas and arteriovenous malformation after embolization of cerebral arteriovenous fistula : case report. *Childs Nerv Syst* **28** : 1981-1983, 2012.
- 3) Barstad RM, Buchmann MS, Hamers MJ, Örning L, Ørvim U, Stormorken H, Sakariassen KS : Effects of ionic and non-ionic contrast media on endothelium and on arterial thrombus formation. *Acta Radiol* **37** : 954-961, 1996.
- 4) Chen CJ, Lee CC, Ding D, Starke RM, Chivukula S, Yen CP, Moosa S, Xu Z, Pan DH, Sheehan JP : Stereotactic radiosurgery for intracranial dural arteriovenous fistulas : a systematic review. *J Neurosurg* **122** : 353-362, 2015.
- 5) Fudaba H, Kubo T, Goda M, Sugita K, Morishige M, Onishi K, Ishii K, Anan M, Nagai Y, Fujiki M : The potentiality for development of multiple dural arteriovenous fistulas after ligation of the internal jugular vein : A case report. *NMC Case Rep J* **4** : 71-73, 2017.
- 6) Goddard AJ, Khangure MS : Multiple dural arteriovenous fistulas radiologic progression and endovascular cure. Case report. *Interv Neuroradiol* **8** : 183-191, 2002.
- 7) Guo Y, Yu J, Zhao Y, Yu J : Progress in research on intracranial multiple dural arteriovenous fistulas. *Biomed Rep* **8** : 17-25, 2018.
- 8) Gupta R, Horowitz M, Tayal A, Jovin T : De novo development of a remote arteriovenous fistula following transarterial embolization of a carotid cavernous fistula : case report and review of the literature. *AJNR Am J Neuroradiol* **26** : 2587-2590, 2005.
- 9) Ha SY, Kwon YS, Kim BM, Kim DI, Kim DJ : Clinical and angiographic characteristics of multiple dural arteriovenous shunts. *AJNR Am J Neuroradiol* **33** : 1691-1695, 2012.
- 10) Hagiwara S, Miyazaki T, Tsuji M, Kambara M, Yoshikane T, Nagai H, Akiyama Y : A case of de novo anterior condylar dural arteriovenous fistula long after curative transvenous embolization of contralateral anterior condylar arteriove-

Table 1 Summary of case reports of de novo fistulas after treated CS-DAVF

Study	Published	First treatment	Time interval (months)	Sinus thrombosis	New fistula location	Laterality
N. Kuwayama et al	1989	Angiogram only	4	Yes	TS	Ipsilateral
H. Nakagawa et al	1992	TAE/TVE	5	—	SS, TS	Ipsilateral
K. Yamashita et al	1993	TAE/TVE	12	No	SS	Ipsilateral
T. Makiuchi et al	1998	TVE	6	No	SS	Ipsilateral
T. Kawaguchi et al	1999	TVE	24	—	TS	Ipsilateral
Y. Kubota et al	1999	TVE	4	—	ACC	Ipsilateral
H. Kiyosue et al	2002	TVE	5	Yes	SS	Ipsilateral
		TVE	5	No	ACC	Ipsilateral
R. Gupta et al	2005	TAE	4	No	SS	Contralateral
SY. Ha et al	2012	TAE	17	Recanalized	SS	Ipsilateral
		TVE	17	Yes	MS	Contralateral
Present case	2019	TVE	12	Yes	ACC/TS	Ipsilateral

ACC : anterior condylar confluence, CS : cavernous sinus, FS : falcine sinus, GKS : gamma knife surgery, MS : marginal sinus, SS : sigmoid sinus, TAE : transarterial embolization, TS : transverse sinus, TVE : transvenous embolization, — : not mentioned

Table 2 Summary of case reports of de novo fistulas after iatrogenic sinus occlusion

Study	Published	Underling disease	First treatment	Occluded point	Time interval (months)	New fistula location
N. Kuwayama et al	1989	—	Angiogram only	TS	4	TS
T. Sakaki et al	1996	Ameloblastoma	Ligation	SS	73	TS
		Meningioma	Ligation	SS	42	TS
		Meningioma	Ligation	SS	65	TS
		Neurioma	Ligation	SS	54	TS
		Glomus jugulare tumor	Ligation	SS	22	TS
H. Kiyosue et al	2002	DAVF	TVE	SS	5	SS
AJ. Goddard et al	2002	—	Angiogram only	TS	60	TS
A. Kurata et al	2006	DAVF	TVE	SS	26	SSS
SY. Ha et al		DAVF	TVE	IPS	17	MS
		DAVF	TAE/TVE/GKS	Torcular	50	Torcular
		DAVF	TAE	TS	12	Torcular
JG. Ngerageza	2016	Tongue cancer	Neck dissection	IJV	24	TS
H. Fudaba	2017	Tongue cancer	Neck dissection	IJV	4	TS
Present case	2019	DAVF	TVE	SS	12	ACC/TS

ACC : anterior condylar confluence, CS : cavernous sinus, FS : falcine sinus, GKS : gamma knife surgery, IJV : internal jugular vein, IPS : inferior petrosal vein, MS : marginal sinus, SS : sigmoid sinus, SSS : superficial sagittal sinus, TAE : transarterial embolization, TS : transverse sinus, TVE : transvenous embolization, — : not mentioned

nous fistula. *Case Rep Med* 2016 : 6974526, 2016.

- 11) Jones CI, Goodall AH : Differential effects of the iodinated contrast agents Ioxaglate, Iohexol and Iodixanol on thrombus formation and fibrinolysis. *Thromb Res* 112 : 65-71, 2003.
- 12) 川口 務, 河野輝昭, 金子好郎, 堤 正則, 大井川秀聡, 風川 清 : 頸動脈海綿静脈洞瘻の経静脈塞栓術後に生じた横-S 状静脈洞硬膜動静脈瘻の 1 例. *脳と神経* 51 : 1065-1069, 1999.
- 13) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, Yamashita M, Nagatomi H, Mori H : Recurrence of dural arteriovenous fistula in another location after selective transvenous coil emboliza-

tion : report of two cases. *AJNR Am J Neuroradiol* 23 : 689-692, 2002.

- 14) Kubota Y, Ueda T, Kaku Y, Sakai N : Development of a dural arteriovenous fistula around the jugular valve after transvenous embolization of cavernous dural arteriovenous fistula. *Surg Neurol* 51 : 174-176, 1999.
- 15) Kurata A, Suzuki S, Iwamoto K, Yamada M, Fujii K, Kan S : New development of a dural arteriovenous fistula (AVF) of the superior sagittal sinus after transvenous embolization of a left sigmoid sinus dural AVF. Case report and review of the literature. *Interv Neuroradiol* 12 : 363-368, 2006.
- 16) Kuwayama N, Takaku A, Nishijima M, Endo S, Hirao M :

- Multiple dural arteriovenous malformations. Report of two cases. *J Neurosurg* **71** : 932-934, 1989.
- 17) Makiuchi T, Takasaki K, Yamagami M, Oda H, Todoroki K, Atsuchi M, Kadota K : A case of sigmoid sinus dural arteriovenous fistula after treated cavernous dural arteriovenous fistula. *Interv Neuroradiol* **4** Suppl 1 : 219-222, 1998.
 - 18) Nakagawa H, Kubo S, Nakajima Y, Izumoto S, Fujita T : Shifting of dural arteriovenous malformation from the cavernous sinus to the sigmoid sinus to the transverse sinus after transvenous embolization. A case of left spontaneous carotid-cavernous sinus fistula. *Surg Neurol* **37** : 30-38, 1992.
 - 19) Ngerageza JG, Horiuchi T, Murata T, Aoyama T, Hongo K : Iatrogenic dural arteriovenous fistula after radical neck dissection for metastatic malignant disease : A case report. *Head Neck* **38** : E87-90, 2016.
 - 20) Sakaki T, Morimoto T, Nakase H, Kakizaki T, Nagata K : Dural arteriovenous fistula of the posterior fossa developing after surgical occlusion of the sigmoid sinus. *J Neurosurg* **84** : 113-118, 1996.
 - 21) Terada T, Higashida RT, Halbach VV, Dowd CF, Tsuura M, Komai N, Wilson CB, Hieshima GB : Development of acquired arteriovenous fistulas in rats due to venous hypertension. *J Neurosurg* **80** : 884-889 1994.
 - 22) Uranishi R, Nakase H, Sakaki T : Expression of angiogenic growth factors in dural arteriovenous fistula. *J Neurosurg* **91** : 781-786, 1999.
 - 23) van Dijk JM, TerBrugge KG, Willinsky RA, Wallace MC : Multiplicity of dural arteriovenous fistulas. *J Neurosurg* **96** : 76-78, 2002.
 - 24) Wang GC, Chen KP, Chiu TL, Su CF : Treating intracranial dural arteriovenous fistulas with gamma knife radiosurgery : A single-center experience. *Tzu Chi Med J* **29** : 65-71, 2017.
 - 25) Yamashita K, Taki W, Nakahara I, Nishi S, Sadato A, Kikuchi H : Development of sigmoid dural arteriovenous fistulas after transvenous embolization of cavernous dural arteriovenous fistulas. *AJNR Am J Neuroradiol* **14** : 1106-1108, 1993.

要 旨

海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻術後および医原性 S 状静脈洞閉塞後に 新規形成された多発硬膜動静脈瘻の 1 例

辻 博文 後藤 正憲 箸方 宏州 岩崎 孝一

CS-DAVF に対する治療介入後に医原性静脈洞閉塞を伴い、ACC-DAVF と TS-DAVF の新規出現をきたした症例を報告する。

症例は頭痛を主訴とする 74 歳女性であり、精査で CS-DAVF (Borden type III) を認めた。TVE による治療は成功しなかったが、再治療を企図した 2 週間後の精査で CS-DAVF の消失と同側の S 状静脈洞閉塞を認めた。しかし 1 年後の精査で、同側の ACC-DAVF (Borden type I) と TS-DAVF (Borden type II) を新規に認めた。TS-DAVF に対して TVE と TAE を施行し完治が得られ、再発は認めなかった。DAVF の塞栓術後、医原性静脈洞閉塞を伴った場合には新規 DAVF をきたす可能性があり、定期的な画像検査が必要である。

脳外誌 29 : 207-214, 2020

頭蓋内硬膜動静脈瘻発症の謎

奈良県立医科大学脳神経外科 中川一郎

頭蓋内硬膜動静脈瘻の発生に関しては古くから数多くの議論があり、脳静脈洞閉塞がその一因であることは以前から指摘されている。しかし両病態の関係は一方方向性ではなく、実際には開頭手術後や脳静脈洞血栓症などによる静脈洞閉塞後に硬膜動静脈瘻が生じる場合と、硬膜動静脈瘻が発生し進行していく過程で静脈洞閉塞が生じる場合のいずれも認められる。硬膜動静脈瘻の発生機序に関しては、著者らが考察で述べているとおり局所的な静脈高血圧が血管新生因子の発現を促し硬膜上のシャント形成および進展に寄与することが実験的にも示されている

が、その詳細はいまだ十分には解明されていない。本例は、時間的に多発した硬膜動静脈瘻の側面と脳静脈洞閉塞後に生じた硬膜動静脈瘻の2つの側面をもつと考えられる。よって、より再発リスクは高いと考えられ、もしも十分なフォローアップが行われていなければ重篤な後遺症を生じていたかも知れず、フォローアップの重要性を示した貴重な症例報告である。われわれ治療医はこのことを十分認識して画像フォローアップを行うことが求められると同時に、この“謎”の多い病態の解明に向けて今後も向き合っていく必要がある。