症例報告

両側上小脳動脈硬膜枝を流入動脈とした 小脳テント硬膜動静脈瘻の 1 例

立林洸太郎¹⁾ 垣田寛人²⁾ 阪本大輔¹⁾ 内田和孝⁴⁾ 白川 学⁴⁾ 前野和重³⁾ 吉村紳一⁴⁾

Tentorial dural arteriovenous fistula fed by dural branches of bilateral superior cerebellar arteries: a case report

Kotaro TATEBAYASHI¹⁾ Hiroto KAKITA²⁾ Daisuke SAKAMOTO¹⁾ Kazutaka UCHIDA⁴⁾
Manabu SHIRAKAWA⁴⁾ Kazushige MAENO³⁾ Shinichi YOSHIMURA⁴⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Sanda City Hospital

²⁾Department of Neurosurgery, Yoshida Hospital

³⁾Department of Neurosurgery, Aijinkai Takatuki Hospital

⁴⁾Department of Neurosurgery, Hyogo College of Medicine

● Abstract ●

Objective: We report a case of tentorial dural arteriovenous fistula (dAVF) fed by dural branches of bilateral superior cerebellar arteries.

Case presentation: A 74-year-old man presented dysarthria and vomiting. MRI revealed subarachnoid hemorrhage and cerebellar hemorrhage. Cerebral angiography demonstrated tentorial dAVF fed by dural branches of bilateral superior cerebellar arteries. After transarterial embolization using n-butyl-2-cianoacrylate (NBCA), the drainer was successfully coagulated and removed surgically.

Conclusion: A rare case of the dAVF fed by only dural branches of bilateral superior cerebellar arteries was reported. Treatment strategy based on precise vascular architecture was useful to obtain complete cure.

● Key words ●

tentorial arteriovenous fistula, superior cerebellar artery, transarterial embolization

1) 三田市民病院 脳神経外科

2) 吉田病院 脳神経外科

3) 愛仁会高槻病院 脳神経外科

4) 兵庫医科大学病院 脳神経外科

<連絡先: 立林洸太郎 〒669-1321 兵庫県三田市けやき台3丁目1番地1 E-mail: kotarotatebayashi@hotmail.co.jp >

(Received November 28, 2013 : Accepted April 14, 2014)

doi: 10.5797/jnet.cr.13045

はじめに

小脳テント硬膜動静脈瘻(tentorial dural arteriovenous fistula; dAVF)は本邦で全硬膜動静脈瘻の内4.8%と報告¹⁾されており、極めて稀な疾患である。Tentorial dAVFは静脈洞を介さずに直接皮質静脈に短絡する non-sinusal type であり、頭蓋内出血や静脈梗塞等の aggressive feature を呈することが多いため、積

極的な治療が必要である。今回我々は経動脈的塞栓術(transarterial embolization; TAE)と外科的手術にて根治を得た両側上小脳動脈硬膜枝を流入動脈とした tentorial dAVF の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 74歳, 男性。

主訴：呂律困難，嘔吐。

既往歴：高血圧，高脂血症，高尿酸血症。

現病歴：201X年X月，入浴中に気分不良となり，呂律困難と嘔吐が出現したため，当院に救急搬送された。

入院時現症：Japan Coma Scale I-1で失調性構音障害を認めたが，他の神経学的脱落所見は認めなかった。

画像所見：入院時頭部CT画像，及び頭部MRI FLAIR画像(Fig. 1)で小脳虫部，テント下小脳上面に広がる高吸収域，高信号域を認め，小脳出血及びクモ膜下出血と診断した。T2強調画像では，右小脳半球にflow void所見を認めた。脳血管造影検査(Fig. 2)では両側上小脳動脈硬膜枝が小脳テント部のvenous pouchへ流入し，架橋静脈，脳表静脈を介して錐体静脈へ流出する所見を認め，tentorial dAVF(Borden type 3, Cognard type 3)と診断した。シャントポイントはテント下面内側後方に存在していた。

治療方針：シャントポイントはテント下面内側に存在しており，直達手術はアプローチに難渋すると考えTAEを優先することとした。左上小脳動脈は分岐部からシャントポイントまでの距離が長く，シャントポイント近傍までマイクロカテーテルを誘導することが困難と考えられた。このため右上小脳動脈からTAEを行い，n-butyl-2-cianoacrylate(NBCA)を架橋静脈まで流入させて左上小脳動脈のシャント血流も同時に消失させることを企図した。本例では右上小脳動脈の重複を認め，superior trunk(rostral trunk)からの皮質枝であるvermian arteryのmedial branch, paramedian branchと左上小脳動脈のvermian arteryと思われる血管が脳幹背側を対側に回り，硬膜枝となり両者が硬膜動静脈瘻を形成しており，vermian artery遠位部までマイクロカテーテルを誘導できれば安全にTAEが施行できると考えた。この手技にてシャント血流が残存した場合は，二期的に外科的手術にて流出静脈遮断術を行う方針とした。

血管内治療(TAE)(Fig. 3):全身麻酔下に右大腿動脈経由で6F Fubuki(朝日インテック，愛知)を左椎骨動脈に留置し，右上小脳動脈をMarathon microcatheter(eV3 Covidien, Irvine, CA, USA)とMirage .008 Guidewire(eV3 Covidien)を用いて選択しようとしたが難渋した。次にExcelsior SL10 preshaped J(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)をCHIKAI10 200 cm(朝日インテック)を用いて，脳底動脈先端部で反転させ右上

Fig. 1

MRI FLAIR image showing subarachnoid hemorrhage and cerebellar hemorrhage.

小脳動脈に誘導させ，弛みをとった後exchange法にてMarathon microcatheter(eV3 Covidien)を右上小脳動脈に誘導した。Vermian artery遠位部にて，選択的血管造影を行った。選択的血管造影ではテント内側部のシャントポイントから架橋静脈，軟膜静脈，髄質静脈を介して再度脳表に戻り，vein of great horizontal fissureを経て錐体静脈に流出し，その後ガレン静脈へ流出する経路(①transverse pontine vein, anterior pontomesencephalic vein, peduncular vein, basal veinを介する経路，及び②brachial vein, lateral mesencephalic vein, precentral cerebellar veinを介する経路)とinferior vermian veinを経て直接直静脈洞に流出する経路が明らかになった。その後25%NBCAにてvermian artery遠位部よりTAEを行ったが，feeder occlusionとなり，対側上小脳動脈からのシャント血流が残存した。

外科的術中所見(Fig. 4):腹臥位にてsupracerebellar-infratentorial approachを行った。小脳上面の動脈化した架橋静脈をテント側に追っていくとテント面にシャントポイントを認め，硬膜動静脈瘻であることが確認できた。流出静脈をテントと離れる方向に追っていくと流出静脈がクモ膜を貫通し更に軟膜下

Fig. 2

Preoperative left vertebral angiography (anterior-posterior view).

A: The arterial phase revealed a tentorial dural arteriovenous fistula (dAVF) fed by bilateral dural branches of superior cerebellar arteries (SCAs).

B: The venous phase revealed the shunt drained into the ipsilateral petrosal vein.

C: Preoperative three-dimensional angiography demonstrated a shunt point of the dAVF (the asterisk indicates a shunt point). Branches of both SCAs were the feeders of the dAVF.

へ進み、実質内へ流出していくことが確認できた。シャントポイント近傍の流出静脈にテンポラリークリップをかけると動脈化した架橋静脈の静脈化が確認できたため、同部位にミニクリップをかけ流出静脈を凝固切断した。

術後血管造影：Tentorial dAVF の消失を確認した。

術後経過：失調症状は残存したが、リハビリテーションにて日常生活は自立し、自宅退院となった。

術後1年の時点で再発を認めていない。

考 察

Tentorial dAVF は他の頭蓋内 dAVF と同様に成因は不明で、血行動態の把握と治療方針の決定に難渋することがある。本例では何らかの原因で正中部のテント静脈洞が閉塞し dAVF が生じたと推察され、結果として小脳出血で発症した aggressive dAVF であ

Fig. 3

A: Selective angiography of the right superior cerebellar artery (left oblique view) showing the shunt draining into the petrosal vein and straight sinus. Arrows indicate vein of great horizontal fissure and the petrosal vein. Arrowheads indicate inferior vermian vein and straight sinus (the asterisk indicates a shunt point).
 B: The shunt was embolized transarterially using n-butyl-2-cianoacrylate from the vermian artery.

Fig. 4

Intra operative view demonstrates a shunt point (the asterisk indicates a shunt point).

り、治療が必要と考えられた。

血管内治療の増加に伴い、流入動脈の評価は重要となっている。テント栄養血管として一般的に、海綿静脈洞部内頸動脈からの分岐である marginal tentorial artery of Bernasconi and Cassinari と basal tentorial artery、椎骨動脈硬膜枝、後頭動脈、中硬膜

動脈、後耳介動脈、後大脳動脈からの分岐である artery of Davidoff and Schechter (ADS) 等が知られている。発生学的に pial artery の役割を担う、前下小脳動脈や後下小脳動脈が硬膜枝をもつ可能性もある。上小脳動脈硬膜枝の走行や灌流領域に関する記載は従来の教科書等にあるが、テントの栄養血管としては十分に認知されていない。解剖研究における報告で、上小脳動脈硬膜枝が関与したとする報告は散見されるが、その臨床的特徴についての報告は少ない^{2,3)}。我々が渉猟し得た範囲では、上小脳動脈硬膜枝のみが feeder となった tentorial dAVF の症例報告は見あたらなかった。Byrne ら²⁾は自験例から上小脳動脈硬膜枝の血管造影所見上の特徴を「血管造影側面像において上小脳動脈硬膜枝は前方から後方に向かって一直線もしくは下方に軽度凹み、正面像では正中に向かって屈曲し、テント切痕の後ろで正中に達し、marginal tentorial artery と平行に走行する」としている。また彼らは上小脳動脈硬膜枝と ADS は両者とも正中部にシャントポイントを形成し、これらの区別が重要と述べている。ADS はテント上を走行し、上小脳動脈硬膜枝はテント下を走行するため比較的区別は容易であるが、上小脳動脈硬膜枝と ADS

は互いに吻合を形成することがあるとしている。

Tentorial dAVF は non-sinusal type dAVF であり、直接架橋静脈に還流するため、本例のように頭蓋内動脈の硬膜枝のみから経クモ膜的に硬膜面に流入血管が生じる dAVF の場合には、流出静脈、流入動脈の評価に加え、シャントポイントが硬膜面に存在するか、軟膜面に存在するかは病態を鑑別する上で重要な臨床的要素となる。またシャントポイントの同定は直達手術のアプローチルートの決定にも重要^{4,5)}である。

dAVF の治療には外科的手術、血管内治療、定位放射線治療、それらの組み合わせにより治療が行われている。Tentorial dAVF の第一選択は外科的手術による流出静脈遮断、切離術となっているが⁵⁾、最近では TAE による良好な成績も報告されている⁶⁾。本症例は外科的手術のアプローチが比較的困難な内側型の tentorial dAVF であり血管内治療を優先した。Tentorial dAVF の場合、TVE は straight sinus と交通のある場合に施行可能となる場合があるものの、多くの症例で適応はない⁷⁾。Kim ら⁸⁾は dAVF に対する NBCA による経動脈的塞栓術の検討を行っており、彼らの報告によると根治率は前期治療群では 61 病変中 12 病変 (20%)、後期治療群では 60 病変中 24 病変 (40%) であり、特に Borden type 3 の患者では 10% から 55% と著明に治療成績が改善していたとされる。また NBCA の濃度は後期治療群で明らかに低濃度 (37% vs 25%; $p < 0.001$) であり、手技に伴う合併症は 115 例中 9 例 (7.8%) で、1 例 (0.9%) で永続的左片麻痺が生じたと報告している。このことから dAVF に対する TAE 治療には明らかな learning curve が存在し、根治率、NBCA の濃度等の検討には経験が大きな差をもたらすが、十分な血管解剖学的知識を有していれば、初期手技より永続的な合併症は回避できるとしている。上小脳動脈には脳幹を栄養する穿通枝や前小脳枝が存在し、これらの分岐より近位部にて TAE を行うと脳幹部梗塞を生じる危険がある。ただし、硬膜枝は迂回槽より分岐することが多く、前小脳枝はそれよりも遠位部の四丘体槽にある vermian artery より分岐することがあり、このような症例で前小脳枝の灌流領域が広い場合には TAE ではなく外科的手術を選択した方が安全と考えられる。TAE を行う場合には少なくとも穿通枝の遠位にマイクロカテーテルを誘導することが肝要である。近年 Onyx を

用いた塞栓術の報告^{9,10)}が散見され、比較的容易に静脈側まで塞栓物質を注入できることから高い根治性が期待できるとされており、今後の認可が待たれる。

本例では pial arteriovenous fistula との鑑別、及び合併症のない TAE 実施において上小脳動脈硬膜枝の理解とその評価が臨床的に非常に重要であった。

結 語

頭蓋内出血にて発症し、両側上小脳動脈硬膜枝のみを feeder とした tentorial dAVF の一例を報告した。血管解剖の知識、血管造影検査の十分な読影の重要性を認識した 1 例であった。

本論文に関連し、開示すべき利益相反関係にある企業はありません。

文 献

- 1) 桑山直也, 久保道也, 遠藤俊郎, 他. わが国における硬膜動静脈瘻の治療の現状. 脳外誌 2011; 20: 12-19.
- 2) Byrne JV, Garcia M. Tentorial dural fistulas: endovascular management and description of the medial dural-tentorial branch of the superior cerebellar artery. *AJNR Am J Neuroradiol* 2013; 34: 1798-1804.
- 3) Weil AG, McLaughlin N, Denis D, et al. Tentorial branch of the superior cerebellar artery. *Surg Neurol Int* 2011; 2: 71.
- 4) Kakarla UK, Deshmukh VR, Zabramski JM, et al. Surgical treatment of high-risk intracranial dural arteriovenous fistulae: clinical outcomes and avoidance of complications. *Neurosurgery* 2007; 61: 447-457.
- 5) Lawton MT, Sanchez-Mejia RO, Pham D, et al. Tentorial dural arteriovenous fistulae: operative strategies and microsurgical results for six types. *Neurosurgery* 2008; 62(3 Suppl 1): 110-124.
- 6) Wajnberg E, Spilberg G, Rezende MT, et al. Endovascular treatment of tentorial dural arteriovenous fistulae. *Interv Neuroradiol* 2012; 18: 60-68.
- 7) Tomak PR, Cloft HJ, Kaga A, et al. Evolution of the management of tentorial dural arteriovenous malformations. *Neurosurgery* 2003; 52: 750-760.
- 8) Kim DJ, Willinsky RA, Krings T, et al. Intracranial dural arteriovenous shunts: transarterial glue embolization—experience in 115 consecutive patients. *Radiology* 2011; 258: 554-561.
- 9) Carlson AP, Taylor CL, Yonas H. Treatment of dural arteriovenous fistula using ethylene vinyl alcohol (onyx) arterial embolization as the primary modality: short-term results. *J Neurosurg* 2007; 107: 1120-1125.
- 10) Cognard C, Januel AC, Silva NA, et al. Endovascular treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas with cortical venous drainage: new management using Onyx. *AJNR Am J Neuroradiol* 2008; 29: 235-241.

要 旨

【目的】両側上小脳動脈硬膜枝を流入動脈とした小脳テント硬膜動静脈瘻の1例を報告する。【症例呈示】74歳男性，呂律困難，嘔吐で発症。小脳出血，くも膜下出血を認め，両側上小脳動脈硬膜枝を流入動脈とした小脳テント硬膜動静脈瘻からの出血と診断した。シャントポイントが正中側に存在したため，まず経動脈的塞栓術を施行し，シャントの残存に対して，外科的手術を追加し，根治を得た。【結論】本症例は両側上小脳動脈硬膜枝のみを流入血管とする極めて稀な硬膜動静脈瘻であることが手術的にも確認された。上小脳動脈硬膜枝の認知の重要性と血管内治療の可能性について考察する。