症例報告

Triaxial system により経動脈的塞栓術を行った腰部 spinal ventral epidural arteriovenous fistula の 1 例

芳村雅隆 廣田 晋 寺門利継 タンマモングットティプアーパー 伊藤なつみ 山本信二

A case of spinal ventral epidural arteriovenous fistula of the lumbar spine successfully treated by transarterial embolization by using a triaxial system

Masataka YOSHIMURA Shin HIROTA Toshitsugu TERAOKA
Thiparpa THAMAMONGOOD Natsumi ITO Shinji YAMAMOTO

Department of Neurosurgery, Tsuchiura Kyodo General Hospital

● Abstract ●

Objective: We report a case of spinal ventral epidural arteriovenous fistula (SVEDAVF) which was successfully treated by using a triaxial system for transarterial embolization (TAE) with N-butyl 2-cyanoacrylate (NBCA).

Case presentation: A 78-year-old man developed gradual progression of sensorimotor disturbance of lower extremities and vesicorectal dysfunction due to myelopathy, and was admitted to our hospital. Workup imaging studies revealed SVEDAVF at the third lumbar spine and perimedullary venous congestion which was responsible for the myelopathy. Bilateral dorsal somatic branches of the third lumbar artery were connected to the fistula. Although, the fistula was located on the left side of the ventral epidural venous plexus, the branch on the right side was the dominant feeding artery. Therefore, we performed TAE via the third lumbar artery on the right side. In order to deliver a microcatheter to the retrocorporeal anastomosis steadily, we inserted an intermediate catheter in between a guiding catheter and a microcatheter to make the catheter system to a triaxial one. As a result, the fistula was successfully occluded with NBCA.

Conclusion: The triaxial system provided a good distal accessibility that resulted in safe and effective TAE.

● Key words ●

spinal ventral epidural arteriovenous fistula, endovascular treatment, transarterial embolization, triaxial system

土浦協同病院 脳神経外科

<連絡先: 芳村雅隆 〒 300-0053 茨城県土浦市真鍋新町 11-7 E-mail: mstkktsm@yahoo.co.jp >

(Received March 20, 2015 : Accepted April 26, 2015)

doi: 10.5797/jnet.cr.2015-0012

緒 言

血管内治療において、ガイディングカテーテルの安定性はマイクロカテーテルの到達性を向上させ、手技を安全・確実にこなす上で非常に重要である。Triaxial system は段階的にカテーテルの profile を低下させることで、ガイディングカテーテルによる近位での剛性と中間カテーテルによる、より遠位でのサポー

ト力により、マイクロカテーテルの末梢到達性や操作性の向上が得られ、近年、脳血管内治療で有用なテクニックとして広がりつつある¹⁻⁵⁾。しかし、脊髄血管治療においては、経由する血管が肋間動脈や腰動脈などで径が細いため、適合するカテーテルが限られる。今回、腰部の spinal ventral epidural arteriovenous fistula (SVEDAVF) に対する経動脈的塞栓術において、マイクロカテーテルとして Carnelian Marvel S

1.6/1.8Fr(東海メディカルプロダクツ, 愛知, 以下 Marvel)を利用した triaxial system が非常に有用であったので, 技術面に重点を置いて症例を報告する.

症例呈示

患者: 78 歳, 男性.

主訴: 歩行障害, 排尿障害.

既往歴: 52 歳頃, 狭心症(複数回の経皮的冠動脈拡張術). 50 歳頃からの高血圧症(内服加療中).

現病歴: 入院 6 ヶ月前から緩徐進行性の下肢対麻痺を自覚し, 膀胱直腸障害も出現してきたため, 当院受診, 入院となった.

入院時所見: 歩行不能. 徒手筋力検査は両側共に腸腰筋で 3, 大腿四頭筋で 3, 大腿屈筋群で 3, 前脛骨

筋で 1, 下腿三頭筋で 3 であった. 両下肢の振動覚は消失し, 足首より遠位の痛覚・表在感覚は低下していた. 下肢腱反射は両側で全て消失していた. 弛緩性膀胱による排尿困難と便秘が見られた.

入院時画像所見: MRI T2 矢状断で脊髓内に高信号の病変があり (Fig. 1A), 冠状断では脊髓表面に拡張した異常血管網が認められた (Fig. 1B). CTA では第 3 腰椎の左腹側硬膜外静脈叢に造影剤の貯留が見られ (Fig. 2A), これから連続して左根静脈が描出され, さらに脊髓表面の静脈が描出されていた (Fig. 2B).

入院後経過: 脊髓の動静脈 shunt 疾患による静脈鬱滞により脊髓障害が生じており, 術前評価目的で脊髓血管撮影を実施した.

術前脊髓血管造影: 局所麻酔下に右大腿動脈穿刺で

Fig. 1

Sagittal (A) and coronal (B) sections of T2-weighted MR images. Th 9 and Th 12 correspond to the 9th and 12th thoracic vertebrae, respectively.

A: High signal intensity area is observed from the level of 7th to 11th thoracic vertebra (arrow).

B: The perimedullary vein is abnormally dilated (arrow).

4Fr ミカエルソン型血管造影カテーテル(メディキット, 東京)と Masters HF マイクロカテーテル(朝日インテック, 愛知)を用いて施行した. 右第3腰動脈撮影で dorsal somatic branch から retrocorporeal anastomosis を介して左腹側硬膜外静脈叢に shunt を形成し, venous pouch を経由して根静脈から脊髄周囲静脈へと逆流する動静脈瘻が確認できた(Fig. 3A-D). 左第3腰動脈撮影でも dorsal somatic branch が shunt に流入していたが, venous pouch が微かに造影されるものの, 根静脈は描出されず, 右からの血流がより優勢であるものと考えられた(Fig. 3E).

経動脈的にアクセス可能な feeding artery を有し, shunt pouch である硬膜外静脈叢から脊髄周囲静脈へ

と drainage されるタイプであり, 根治を目的として経動脈的の塞栓術を施行した.

血管内治療: 手術は全身麻酔で, 運動誘発電位(MEP)モニター下に行なった. 右大腿動脈を穿刺し 5Fr 25 cm sheath を挿入した後, heparin 4000 単位を静注した. ガイディングカテーテルとして 5.1Fr エルウエイ(テルモ・クリニカルサプライ, 岐阜)を選択したが, 右第3腰動脈にカテーテルを挿入できなかったため, 有効長 70 cm の 4Fr ミカエルソン型血管造影カテーテルに変更した. これにより, 右第3腰動脈入口部にカテーテル先端を挿入でき, この中に先端 2.6Fr, 手元 2.8Fr で有効長 125 cm のカテーテルである Masters HF を挿入し, Chikai 14 200 cm(朝日イン

Fig. 2

Coronal reconstruction of contrast-enhanced CT images of the spine. Th and L correspond to thoracic and lumbar spine, respectively. Numbers show ordinal of each vertebra.

A: A venous pouch is situated on the left side of ventral epidural space (arrow).

B: The perimedullary vein (arrow) and the left radicular vein (arrowheads) are also dilated.

Fig. 3

Pre-operative selective angiograms of the 3rd lumbar arteries.

A and B: Early arterial phase (A) and late arterial phase (B) of anterior-posterior views of the 3rd lumbar artery on the right side.

Black arrowhead indicates the tip of the 2.6Fr microcatheter. Visualized vessels correspond to the dorsal somatic branch (blank arrowheads), the retrocorporeal anastomosis (white arrowheads), the venous pouch (white arrow), the left radicular vein (black arrows), and the perimedullary vein (blank arrow). The dorsal somatic branch comes out from the lumbar artery at a right angle (asterisk).

C and D: Axial (C) and coronal (D) reformatted images of rotational angiography. The figures show locations of the dorsal somatic branch (blank arrowheads), the retrocorporeal anastomosis (white arrowheads), and the venous pouch (white arrow) in relation to the spinal canal.

E: Anterior-posterior view of the 3rd lumbar artery on the left side. Proximal portion of the left dorsal somatic branch (blank arrowheads) is easy to be detected, but its distal part and the fistula (white arrow) are indistinctive. The left radicular vein is not visible from this side.

テック)を用いて右第3腰動脈末梢へと進めた。さらに Masters HF 内に先端 1.6Fr, 手元 1.8Fr で有効長 150 cm の Marvel を挿入し, dosral somatic branch へと誘導しようとしたが, 分岐角が比較的直角に近く, かつ血管径が狭小化していたため(Fig. 3A), カテーテル誘導に難渋した。しかし, Chikai 14 の先端形状を変更することで血管が選択でき, またガイドワイヤーを遠位まで進めることでカテーテルも追従した(Fig. 4A)。

Marvel の先端は retrocorporeal anastomosis を越えて shunt point まで誘導することはできなかったが, 先端が wedge した状態となっており, 造影剤を圧入して撮影を行うと対側の dorsal somatic branch を経由して左第3腰動脈が逆行性に造影された(Fig. 4B)。通常の造影剤注入では shunt 部と椎体への血流のみで, また xylocaine による provocation test で MEP の低下もなかったため, ここから加温した 20% N-butyl

Fig. 4

Anterior-posterior views of intra-procedural angiography.

Figure A shows a non-subtracted image. Figures B-D show digitally subtracted images.

A: The triaxial system enabled the 1.6Fr microcatheter (black arrowheads) to be delivered deep into the retrocorporeal anastomosis (black arrow). The tip of the 4Fr guiding catheter is indicated by a blank arrow. White arrowheads indicate the 2.6Fr intermediate catheter and white arrow indicates its tip.

B: Injection of contrast medium through the microcatheter shows not only venous pouch but also the dorsal somatic branch on the left side in a retrograde fashion (blank arrowheads).

C: Injection of N-butyl 2-cyanoacrylate (NBCA) diluted by Lipiodol. Occlusion of the left radicular vein (white arrow) and the left dorsal somatic branch (black arrow) is obtained.

D: Injection of contrast medium through the intermediate catheter demonstrates complete occlusion of the fistula.

2-cyanoacrylate(NBCA)を用いて経動脈的塞栓を行った。NBCAはshunt pointを超え、venous pouchを経て根静脈まで十分に浸透し、対側のdorsal somatic branchへも逆行性に注入された(Fig. 4C)。Shuntの完全閉塞を確認して手技を終了した(Fig. 4D)。

塞栓術後経過：拡張した脊髓周囲静脈の血流鬱滞からくる閉塞を予防するため、ヘパリンによる抗凝固療法を2日間施行した。両下肢ともに近位筋優位に

軽度ながら麻痺の改善が得られたが、感覚障害の改善は得られず、実用的歩行までには回復しなかった。また、膀胱直腸障害は残存した。術後22日目にリハビリテーション目的に転院となった。

考 察

脊髄の動静脈shunt疾患は比較的稀で、なかでもspinal epidural arteriovenous fistula(SEDVAF)の頻度は

少なく^{6,7)}、成因、病型や病態など不明な点が多い。これまでに報告された病型・病態としては low flow shunt のみならず、neurofibromatosis type 1 (NF1) に関連した high flow な single hole shunt のもの⁸⁾、multiple feeder のもの⁹⁾、NF1 に関連しない single hole shunt のもの¹⁰⁾ などがあり、spinal dural arteriovenous fistula (SDAVF) に比して様々な血行動態を持つことが示唆される。Low flow shunt の場合でも、SDAVF と異なり、feeder が複数存在する 경우가多く^{6,7,11-13)}、perimedullary drainage route が複数存在する症例も存在するため^{7,14)}、治療戦略を立てる上で注意が必要である。

SEDAVF のなかで、脊柱管腹側の硬膜外静脈叢に shunt point を有する SVEDAVF については Kiyosue らによって case series の報告と文献 review が行われている¹³⁾。SVEDAVF は導出静脈のパターンから、perimedullary venous drainage type (PM type)、paravertebral drainage type (PV type)、combined perimedullary and paravertebral drainage type (PMPV type) の 3 型に分けられるが、いずれも、主たる流入動脈は segmental artery から分岐する dorsal somatic branch である。本症例は shunt の存在部位と流出パターンから PM type に属する SVEDAVF と考えられる。

SEDAVF の治療法は外科的手術、血管内治療など様々報告されているが、perimedullary drainage route が 2 本存在し、外科的に主たる導出静脈は結紮できたものの、もう一方の導出静脈が術中に確認できず、shunt が残存した症例が報告されており¹⁴⁾、shunt point と硬膜外静脈叢および導出静脈を術中に確認しつつ、一期的かつ低侵襲に治療し得る血管内治療は SDAVF よりも SEDA VF においてさらに有用であると考えられる。

SVEDAVF のタイプ別治療法としては、PV type および PMPV type では経動脈的塞栓術 (TAE) のみでは根治が難しく、経静脈的塞栓術 (TVE) が必要となるが、PM type では液体塞栓物質を用いた TAE のみで高い根治率が得られる¹³⁾。本症例は PM type であることから TAE の良い適応である。しかし、feeder は左右の第 3 腰動脈から分岐するそれぞれの dorsal somatic branch であったが、術前の診断撮影からは、shunt point の存在部位と対側の右側からの血流がより優位であった。このため、TAE は右第 3 腰動脈経路で行うことにしたが、shunt point 自体は左側に存在しており、TAE に際しては retrocorporeal anastomosis を

介する必要がある、治療システムには十分な末梢への到達性が必要であった。

昨今、脳動脈瘤に対するコイル塞栓術¹⁾や頭蓋内硬膜動静脈瘻の TAE²⁾および TVE³⁾、髄膜腫の術前塞栓術⁴⁾や急性期脳梗塞治療⁵⁾などに際して、安定したカテーテル操作を得るために triaxial system が普及してきた。Triaxial system の利点は、段階的にカテーテルの profile を小さくして行くことで、アプローチルートに強い屈曲蛇行がある場合にも、その末梢側にマイクロカテーテルを誘導できることにあり、より遠位でのマイクロカテーテルの操作性が向上する¹⁻⁴⁾。また、病変に複数回のアプローチを行う必要がある時にも有用である⁵⁾。しかし、脳血管内治療領域で頻用される triaxial system は、多くの場合、ガイディングカテーテルの profile は 6Fr 以上の外径を要する¹⁻⁵⁾ため、肋間動脈や腰動脈など血管径の細い脊髄血管領域ではカテーテルの profile の点から実施が難しい。Marvel はこの需要に応えるため、先端 1.6Fr、手元 1.8Fr にデザインされた製品で、内腔 0.027 inch のカテーテルでも使用可能となっている。これにより、今回使用した Masters HF などを中間カテーテルとして用いれば、4Fr のガイディングカテーテルで triaxial system が組み立てられる。更に、Marvel の優れた点として、血管選択性や末梢到達性に有利な 0.014 inch マイクロガイドワイヤーが使用できることが挙げられる。本症例でも 0.014 inch ガイドワイヤーが使用できたことで、直角に近い分岐角であっても血管を選択でき、細い血管径でも十分末梢までカテーテルを進めることができた。脳血管内治療で末梢到達性の高いマイクロカテーテルとして Magic (Balt Extrusion, Montmorency, France) や Marathon (eV3 Covidien, Irvine, CA, USA) が挙げられ、これらでも到達できた可能性はあるが、細い triaxial system の中に 0.014 inch ガイドワイヤーを使用できたことが、今回の末梢への到達と良好な治療結果をもたらしたと思われる。

マイクロカテーテルの治療テクニックに関しては、Kiyosue らの double catheter technique¹³⁾を行えば、左第 3 腰動脈経路でも TAE による治療が得られていた可能性がある。これは、複数の feeder が関与する場合に、2 本のマイクロカテーテルを別々の feeder に留置し、一方のカテーテルから 5% ブドウ糖液を注入しつつ、他方のカテーテルから NBCA を注入する方法で、NBCA の早期重合と断片化を防いで塞栓

効果を高める非常に優れた方法ではあるが、両側大腿動脈穿刺となり、system が煩雑である。その点、triaxial system は脳血管内治療の領域で頻用されるようになってきており、本症例で提示した device さえあれば容易に実施可能である点で有用と考える。

今回用いた triaxial system の注意点として、マイクロカテーテル挿入後は、ガイディングカテーテルと中間カテーテルからの造影はできないため、マイクロカテーテルよりも近位に NBCA が逆流してきたときにどこまでが許容できるかを、マイクロカテーテルが到達目的部位に至る以前に決定しておく必要がある。具体的にはマイクロカテーテルを誘導する前に中間カテーテルから造影を行う、あるいはマイクロカテーテルが到達目標部位に至る前に一度ガイドワイヤーを抜いて造影を行うなどして、shunt point より近位に上下の分節への予期せぬ anastomosis がないかなどを把握しておく必要がある。

結 語

Shunt point の局在と反対側に main feeder が存在する SVEDAVF の経動脈的塞栓術において、Marvel を用いた triaxial system は末梢到達性の観点から非常に有用であった。

筆頭著者および共著者全員に、本論文に関して開示すべき利益相反状態は存在しない。

文 献

- 1) 加藤依子, 伊藤 靖, 北澤圭子, 他. 6Fr セルリアンカテーテル DD6 を用いた triple coaxial system. *JNET* 2013; 7: 46–50.
- 2) Srivatanakul K, Nishiyama J, Inoue G, et al. Usefulness of the fubuki catheter for embolization of a dural arteriovenous

fistula with liquid material via the middle meningeal artery: Technical notes. *JNET* 2013; 7: 202–206.

- 3) Yuen MH, Cheng KM, Cheung YL, et al. Triple coaxial catheter technique for transfacial superior ophthalmic vein approach for embolization of dural carotid-cavernous fistula. *Interv Neuroradiol* 2010; 16: 264–268.
- 4) 福田健治, 東登志夫, 大川将和, 他. 超低濃度 n-butyl 2-cyanoacrylate を用いた髄膜腫に対する塞栓術. *JNET* 2014; 8: 259–265.
- 5) Kulcsár Z, Yilmaz H, Bonvin C, et al. Multiple coaxial catheter system for reliable access in interventional stroke therapy. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2010; 33: 1205–1209.
- 6) Inagawa S, Yamashita S, Hiramatsu H, et al. Clinical results after the multidisciplinary treatment of spinal arteriovenous fistulas. *Jpn J Radiol* 2013; 31: 455–464.
- 7) Niizuma K, Endo T, Sato K, et al. Surgical treatment of spinal extradural arteriovenous fistula with parenchymal drainage: Report on 5 cases. *Neurosurgery* 2013.
- 8) Kähärä V, Lehto U, Ryymin P, et al. Vertebral epidural arteriovenous fistula and radicular pain in neurofibromatosis type I. *Acta Neurochir (Wien)* 2002; 144: 493–496.
- 9) Paolini S, Colonnese C, Galasso V, et al. Extradural arteriovenous fistulas involving the vertebral artery in neurofibromatosis Type 1. *J Neurosurg Spine* 2008; 8: 181–185.
- 10) Yoshida S, Nakazawa K, Oda Y. Spontaneous vertebral arteriovenous fistula-case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2000; 40: 211–215.
- 11) Ramanathan D, Levitt MR, Sekhar LN, et al. Management of spinal epidural arteriovenous fistulas: interventional techniques and results. *J Neurointerv Surg* 2014; 6: 144–149.
- 12) Rangel-Castilla L, Holman PJ, Krishna C, et al. Spinal extradural arteriovenous fistulas: a clinical and radiological description of different types and their novel treatment with Onyx. *J Neurosurg Spine* 2011; 15: 541–549.
- 13) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, et al. Spinal ventral epidural arteriovenous fistulas of the lumbar spine: angioarchitecture and endovascular treatment. *Neuroradiology* 2013; 55: 327–336.
- 14) Shankar JJ, terBrugge K, Krings T. Spinal epidural arteriovenous fistula with double perimedullary reflux. *Can J Neurol Sci* 2012; 39: 239–241.

JNET 9:163–169, 2015

要 旨

【目的】Triaxial system により経動脈的塞栓術を行った腰部 spinal ventral epidural arteriovenous fistula 症例を報告する。
 【症例】78 歳男性。緩徐進行性の下肢対麻痺、膀胱直腸障害で発症した。第 3 腰椎左腹側硬膜外静脈叢への動静脈 shunt による鬱血性脊髄障害であった。Feeder は左右第 3 腰動脈から分岐する dorsal somatic branch で、shunt 存在部位と対側の血流が優位であった。Triaxial system で右第 3 腰動脈から retrocorporeal anastomosis を介した塞栓術を施行し、shunt の完全閉塞を得た。【結論】脊髄症例においても triaxial system により、マイクロカテーテルを安全、確実に目的部位に到達させ、有効な治療を行うことが可能である。