皮質静脈経路で塞栓術を行った 小脳テント部硬膜動静脈瘻の1例

田中克浩¹⁾ 安田竜太²⁾ 森川篤憲¹⁾ 川口健司¹⁾

A case of tentorial dural arteriovenous fistula treated by transcortical venous embolization

Katsuhiro TANAKA¹⁾ Ryuta YASUDA²⁾ Atsunori MORIKAWA¹⁾ Kenji KAWAGUCHI¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Suzuka General Hospital

²⁾Department of Neurosurgery, Mie University School of Medicine

● Abstract ●

Objective: We report a case of the tentorial dural arteriovenous fistula (dAVF) with a dilated cortical venous drainage and varices, treated by transarterial and transcortical venous embolization.

Case presentation: A 76-year-old man presented with tinnitus and MRI revealed a right temporoparietal cortical vessel abnormality. DSA revealed a right lateral tentorial sinus dAVF draining directly into the right vein of Labbé with cortical venous ectasia and varices. The fistula was located on the right lateral tentorial surface. The shunt flow was reduced by transarterial embolization with coils and N-butyl cyanoacrylate, but relapsed after 1 year. The residual dAVF was successfully obliterated by transcortical venous embolization, which required a triple coaxial system to reach the right vein of Labbé through the superior sagittal sinus via the contralateral jugular vein.

Conclusion: To our knowledge, this is the first case of a lateral tentorial sinus dAVF treated by transcortical venous embolization.

● Key words ●

tentorial dural arteriovenous fistula, transcortical venous embolization

1) 鈴鹿中央総合病院 脳神経外科

2) 三重大学 大学院医学系研究科 脳神経外科

＜連絡先：田中克浩 〒513-8630 三重県鈴鹿市安塚町山之花 1275-53 E-mail: ghost030303@yahoo.co.jp >

(Received April 4, 2015 : Accepted August 4, 2015)

doi: 10.5797/jnet.tn.2015-0016

緒言

硬膜動静脈瘻(dural arteriovenous fistula; dAVF)は硬膜動脈と硬膜静脈の間に異常なシャントが発生する疾患である。海綿静脈洞、横-S状静脈洞、上矢状静脈洞など静脈洞に発生する sinus type dAVF と、前頭蓋底、小脳テント部、大脳円蓋部などに発生する non-sinus type dAVF に大別される。後者は一般的に症候化、出血発症が多いとされ^{1,2)}、直達手術を中心に治療介入することが多い。今回小脳テント部に発生した dAVF に対し経動脈的・経皮質静脈的塞栓術を

行った1例を経験したので報告する。

症例提示

患者：76歳、男性。

主訴：耳鳴り

既往歴：喘息、慢性閉塞性肺疾患

現病歴：201X年、上記主訴にて脳ドックを受診。

神経学的所見、身体所見：特記すべき異常なし。

画像所見：頭部MRI、MRAで右後頭動脈、右中硬膜動脈、右側頭・頭頂葉皮質静脈の拡張を認めシャント性疾患を疑った(Fig. 1A, B)。右横静脈洞壁と右小脳

Fig. 1 MRA (A) showing the dilated right middle meningeal artery, occipital artery, and temporoparietal cortical veins. Axial T₂-weighted image (B) showing the dilated right vein of Labbé. Coronal section of time of flight images (C) showing multiple high-flow signals of small vessels (arrowheads) around the right cerebellar tentorium and the dilated right vein of Labbé (arrow).

テント部に栄養動脈を疑う異常血管像を認めた(Fig. 1C). DSA では右小脳テント部外側に、両側浅側頭動脈、右後頭動脈、右中硬膜動脈、両側後硬膜動脈を流入動脈とし、右側の vein of Labbe のみに流出する dAVF を認めた。シャント血流は vein of Labbe からさらに postcentral vein, anterior parietal vein, superficial sylvian vein へ逆流しており、いずれも拡張し複数の varix を認めた(Borden type III, Cognard type IV). 右横静脈洞はシャント流出に関与しておらず正常灌流を呈しており、血栓化や狭窄を伴っていなかった(Fig. 1C, Fig. 2). また右内頸動脈撮影ではシャント血流を反映し、右側頭葉の皮質静脈描出は乏しかったが、上矢状静脈洞(superior sagittal sinus; SSS)と深部静脈系への流出は良好で鬱滞を認めなかった。

治療方針：皮質静脈逆流と静脈瘤を伴う tentorial dAVF と診断し、耳鳴との関連は不明であったが、出血、症

候化のリスクが高いと考え治療を計画した。シャントの遮断には直達手術が根治的であるが、上記既往症のため低侵襲である血管内治療を選択した。右横静脈洞は dAVF と交通はなく、経動脈の塞栓術(transarterial embolization; TAE)による shunt point の閉塞を試みた。

第1回血管内治療(TAE, Fig. 3)：main feeder の右後頭動脈と両側後硬膜動脈をコイル塞栓した後、右中硬膜動脈から 20% N-butyl cyanoacrylate (NBCA) を注入した。NBCA は shunt point まで到達したが閉塞に至らず、flow reduction の状態で経過観察とした。

第1回術後経過：MRI 上 shunt flow signal が減少していたが、術後約1年で再び明瞭化し、drainage route の一つである anterior parietal vein が閉塞していたことから静脈圧が亢進している可能性も考えられた(Fig. 4A)。このため根治的に経皮質静脈の経静脈的塞栓術(transvenous embolization; TVE)を計画した。

Fig. 2 The right external carotid angiograms (A: lateral view, B: anterolateral view) showing a right tentorial sinus dural arteriovenous fistula (dAVF), fed by the right occipital, middle meningeal, and superficial temporal arteries, draining into the vein of Labbé connecting the postcentral, anterior parietal, and superficial sylvian veins with venous ectasia and varices. White arrow indicates the shunting point (A). The right vertebral angiograms, anteroposterior view (C: arterial phase D: venous phase), showing a dAVF fed by the left posterior meningeal artery, the shunting point (white arrow), and the normal right transverse sigmoid sinus.

アクセスに際し、横・S状静脈洞(transverse sigmoid sinus; TSS)からSSSへの分岐角度、SSSから皮質静脈への分岐角度を考慮し、カテーテル誘導がし易いと予想された反対側の左頸静脈を介したアプローチを計画した(Fig. 5)。shunt pointの閉塞が不可能な場合やデバイス長が不足する場合は、正常灌流に関与しないsingle drainerのvein of Labbeをshunt point近傍で閉塞する予定とした。なお、superficial sylvian veinとpostcentral veinはanastomotic veinとして正常灌流に関与している可能性が高く温存に留意した。

第2回血管内治療(TVE, Fig. 4)：右大腿静脈穿刺しcoaxial systemで6 Fr Shuttle(Cook Medical, Bloomington, IN, USA), 4.2 Fr FUBUKI(朝日インテッ

ク, 愛知), 0.035 inch Quick Flex(カネカメディックス, 大阪)を左頸静脈内に誘導した後, Shuttleを左頸静脈球に、サポートカテーテルとしてFUBUKIをSSSに進めた。次いでExcelsior SL10(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)を0.012 inch GTワイヤー45°(テルモ・クリニカルサプライ, 岐阜)と同Wアングル(同)を用いて右側のpostcentral veinに誘導した。Vein of Labbeへ移行する屈曲部をExcelsior SL-10(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)が越えないため、ガイドワイヤーをTenrou 1014(カネカメディックス, 大阪)に変更し、入れ替え法でマイクロカテーテルもExcelsior 1018に変更し屈曲部を越えvein of Labbeに到達できた。Shunt pointに接近するもデバイス長がごくわずかに不足したため、vein of

Fig. 3 Angiogram during transarterial embolization (A) showing coils (small arrows) placed and N-butyl cyanoacrylate (arrowheads) injected within the main feeders. The left vertebral angiogram (B) and the right external angiograms (C: arterial phase, D: venous phase) showing remarkable shunt flow reduction (large arrow).

Labbe をコイル塞栓することとした(Fig. 4B). ED コイル∞ extrasoft 16 mm/15 cm 2 本, 16 mm/10 cm 4 本(カネカメディックス, 大阪), AXIUM Helix 3 mm/8 cm 1 本, 4 mm/12 cm 1 本(ev3 Covidien, Irvine, CA, USA), Target 360 ultra 4 mm/15 cm 2 本(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)を留置したところで, shunt flow により突然コイル塊とマイクロカテーテルが手元側に押し戻されたが(Fig. 4C), コイル塊を貫通して Excelsior 1018 を再度 shunt point 近傍に誘導し, Target 360 ultra(Stryker, Kalamazoo, MI, USA), HydroCoil 10(テルモ・クリニカル サプライ, 岐阜), AXIUM 3D(ev3 Covidien, Irvine, CA, USA), ED コイル∞ extrasoft(カネカメディックス, 大阪), 同 extrasoft(同)で vein of Labbe 内を塞栓した. 最終確認で shunt flow が著明に減少し(Fig. 4D), 自然血栓化を期待し治療を終了した. また内頸動脈撮影で superficial sylvian vein と postcentral vein が保存され,

正常灌流に関与していたことも確認した(Fig. 4E).

第2回術後経過(Fig. 6): 術後6カ月のDSA再検査にてシャントの消失を確認した. CT, MRI でも脳実質の変化を認めなかった. 耳鳴りは残存し, 内耳性と考えられた.

考 察

Tentorial dAVF は小脳テントに発生した硬膜動静脈瘻で, その発生率は比較的少なく, 桑山らの本邦の疫学調査では3.2%, JR-NET の調査¹⁾では4.8%であった. 発症様式は出血発症が一般的であるが, 脳深部静脈鬱滞による脳幹, 小脳, 視床, 後頭葉の障害^{3,4,5)}, 脊髄静脈鬱滞による myelopathy⁶⁾, 脳神経障害^{7,8,9,10)}(動眼神経麻痺, 三叉神経痛, 顔面けいれん, 滑車神経麻痺), 静脈瘤や拡張静脈の直接圧迫による脳幹障害¹¹⁾などその drainage pattern を反映し多彩で

Fig. 4 The pre-procedural right external angiogram (A) showing persistent shunt flow and occlusion of the right anterior parietal vein (white arrowheads). Transcortical venous embolization of the right vein of Labbé performed (B). A coil mass migrated distally (white arrow) within the vein of Labbé during transvenous embolization (C). The final right external carotid angiogram (D) and right internal carotid angiogram (E) showing near occlusion of the shunt flow and that the superficial sylvian and postcentral veins were preserved.

ある。Shunt flow は tentorial sinus から他の dural sinus に流出することは少なく皮質静脈逆流を発生し易い¹²⁾。このため約 50% と高率に aggressive feature を呈し¹⁾、積極的治療を要することが多い。tentorial sinus の正常解剖は松島¹³⁾や Picard⁶⁾が分類しており、本症例は lateral tentorial sinus に発生したと考えられる。本来この sinus は vein of Labbe の横静脈洞への合流部に存在し側頭葉や後頭葉の皮質静脈も多数集めるが、その吻合に関しては個体差を認める¹⁴⁾。また dAVF の成因は不明であるが、他部位の病変と同じく血栓性素因が指摘されている¹²⁾。

lateral tentorial sinus dAVF の診断については、近接する transverse sinus dAVF との鑑別が必要となる。sinus type に属する transverse sinus dAVF の亜型として sinus の主幹部が正常に開存したものがあり、Piske らは皮質静脈逆流を有する例で、静脈洞内に septation を有し分離された導出路を有するタイプと、静脈洞外に accessory sinus を有するタイプの dAVF を報告し

ている¹⁵⁾。

また多くが non-sinus type に属する lateral tentorial sinus dAVF において tentorial sinus と transverse sinus の連絡が残存する症例 (Cognard type I, II) も稀にあり区別を要する。詳細な鑑別には DSA のみならず cone beam CT や CTA によるシャント部と静脈洞細部の情報収集が有用と考える¹⁶⁾。

血管内治療に関しては、少数ながら存在する Cognard type I, II の tentorial dAVF には TVE が効果的であるが、頻度が多く sinus が開存していない type III, IV では NBCA や Onyx で shunt point の閉塞を目指す TAE が主流となる。一方迂回ルートとなるが、経皮質静脈的に拡張静脈や静脈瘤内を慎重にアクセスできれば shunt point の TVE が理論的に可能である。この方法は皮質静脈を閉塞するため基本的には single drainer にのみ適用されると考えられる。本症例は TAE で治療が得られなかったため、追加治療として左側 TSS から SSS、右側皮質静脈を介し病変にア

クセスする経皮質静脈的塞栓術を施行した。他の dAVF における経皮質静脈的塞栓術による治療例は散見されるが^{17,18)}, tentorial dAVF では渉猟し得る範囲で初めてであった。

本症例のように迂回する経皮質静脈的塞栓術では十

Fig. 5 Schema of transcortical venous embolization: the guiding catheter (single arrowhead) placed at the left jugular bulb, the support catheter (double arrowhead) introduced just proximal to the right postcentral vein, and the tip of microcatheter (triple arrowhead) navigated near the shunting point (arrow) through the vein of Labbé.

分なデバイス長とサポート力が必要なため適宜工夫を要する。本症例では患者身長は 160 cm 台で、CT, MRI を用いた大まかな術前計測で病変到達可能と考えたが、Y コネクターを止血弁に変更後もデバイス長がわずかに不足した。今回は drainer の閉塞で良好な結果が得られたが、到達距離のより短い右頸静脈経由のアプローチ変更や頸静脈直接穿刺、開頭術への変更も柔軟に考慮すべきである。塞栓に際しては皮質静脈内のコイル留置が必要であったが、静脈は脆弱で可動性を有するため tight packing しづらく、凹凸が少ない管腔構造のためコイルの anchoring が困難な場合もある。したがって本症例のような coil migration を予防するためには十分な flow reduction が必要と考えられた。

以上よりいくつかの注意点があるが、single drainer の lateral tentorial sinus dAVF に対する経皮質静脈的塞栓術は開頭術の代替治療として有効であると考えられた。

結 語

Lateral tentorial sinus dAVF に対し経皮質静脈的塞栓術を施行し治療し得た。本法は開頭術の代替治療として有効であると考えられた。

本論文の要旨は、第 30 回日本脳神経血管内治療学会学術総会 (2014.12.4, 横浜) において発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

Fig. 6 Follow-up angiograms (A)(B) showing complete occlusion of the dural arteriovenous fistula.

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. 脳神経外科ジャーナル 2011; 20: 12-19.
- 2) van Dijk JM, terBrugge KG, Willinsky RA, et al. Clinical course of cranial dural arteriovenous fistulas with long-term persistent cortical venous reflux. *Stroke* 2002; 33: 1233-1236.
- 3) Panagiotopoulos V, Kastrup O, Wanke I. Endovascular treatment resolves non-hemorrhagic brainstem dysfunction due to tentorial dural AV fistula. *J Clin Neurosci* 2009; 16: 317-320.
- 4) Morparia N, Miller G, Rabinstein A, et al. Cognitive decline and hypersomnolence: thalamic manifestations of a tentorial dural arteriovenous fistula (dAVF). *Neurocrit Care* 2012; 17: 429-433.
- 5) Benndorf G, Schmidt S, Sollmann WP, et al. Tentorial dural arteriovenous fistula presenting with various visual symptoms related to anterior and posterior visual pathway dysfunction: case report. *Neurosurgery* 2003; 53: 222-226, discussion 226-227.
- 6) Picard L, Bracard S, Islak C, et al. Dural fistulae of the tentorium cerebelli. Radioanatomical, clinical and therapeutic considerations. *J Neuroradiol* 1990; 17: 161-181.
- 7) Mukerji N, Cahill J, Tzerakis N, et al. Venous anastomotic circle, multiple varices and oculomotor palsy-a rare coincidence. *Acta Neurochir (Wien)* 2010; 152: 2205-2209.
- 8) Ott D, Bien S, Krasznai L. Embolization of a tentorial dural arterio-venous fistula presenting as atypical trigeminal neuralgia. *Headache* 1993; 33: 503-508.
- 9) Deshmukh VR, Maughan PH, Spetzler RF. Resolution of hemifacial spasm after surgical obliteration of a tentorial arteriovenous fistula: case report. *Neurosurgery* 2006; 58: E202.
- 10) Mariniello G, Briganti F, Vergara P, et al. Dural tentorial arteriovenous fistula causing isolated trochlear nerve palsy: remission after endovascular embolization. *J Neurointerv Surg* 2012; 4: e5.
- 11) Iwamuro Y, Nakahara I, Higashi T, et al. Tentorial dural arteriovenous fistula presenting symptoms due to mass effect on the dilated draining vein: case report. *Surg Neurol* 2006; 65: 511-515.
- 12) Wajnberg E, Spilberg G, Rezende MT, et al. Endovascular treatment of tentorial dural arteriovenous fistulae. *Interv Neuroradiol* 2012; 18: 60-68.
- 13) Matsushima T, Rhoton AL, de Oliveira E, et al. Microsurgical anatomy of the veins of the posterior fossa. *J Neurosurg* 1983; 59: 63-105.
- 14) Miabi Z, Midia R, Rohrer SE, et al. Delineation of lateral tentorial sinus with contrast-enhanced MR imaging and its surgical implications. *AJNR Am J Neuroradiol* 2004; 25: 1181-1188.
- 15) Piske RL, Campos CM, Chaves JB, et al. Dural sinus compartment in dural arteriovenous shunts: a new angioarchitectural feature allowing superselective transvenous dural sinus occlusion treatment. *AJNR Am J Neuroradiol* 2005; 26: 1715-1722.
- 16) Eesa M, Sharma P, Mitha AP, et al. Angiographic computed tomography with selective microcatheterization in delineating surgical anatomy in the case of a dural arteriovenous fistula. Technical note. *J Neurosurg* 2009; 111: 916-918.
- 17) Goyal M, Terbrugge K, Farb R. Endovascular Retrograde Cortical Venous Approach to Disconnect Retrograde Leptomeningeal Venous Reflux in a Patient with Dural AVF. *Interv Neuroradiol* 1999; 5: 195-198.
- 18) Defreyne L, Vanlangenhove P, Vandekerckhove T, et al. Transvenous embolization of a dural arteriovenous fistula of the anterior cranial fossa: preliminary results. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000; 21: 761-765.

JNET 9:319-325, 2015

要 旨

【目的】小脳テント外側に発生し皮質静脈逆流を呈する硬膜動静脈瘻(dural arteriovenous fistula; dAVF)の経動脈的・経皮質静脈的塞栓術の1例を報告する。【症例】76歳男性。耳鳴りを主訴に精査され、MRI、DSAにて右側のlateral tentorial sinusにシャントを有し、vein of Labbeへ皮質静脈逆流するdAVF(Borden type Ⅲ, Cognard type Ⅳ)を認め血管内治療を行った。初回治療としてN-buthyl cyanoacrylateを用いた経動脈的塞栓術を行い、残存病変に対し対側頸静脈を経由した経皮質静脈的塞栓術を行った。半年後の検査で病変の消失を確認した。【結論】lateral tentorial sinusに発生したdAVFに対し、経皮質静脈的塞栓術を用いて根治し得たのは渉猟できる範囲で初めてであった。開頭術の代替手段として有効であると考えられた。