硬膜動静脈瘻の血管内治療における合併症の現状と対策

桑山 直也, 久保 道也, 堀 恵美子
津村貢太郎, 栄楽 直人, 遠藤 俊郎

Dural Arteriovenous Fistulas: Complications of Endovascular Treatment

Naoya KUWAYAMA, M.D., Michiya KUBO, M.D., Emiko HORI, M.D.,
Koutaro TSUMURA, M.D., Naoto EIRAKU, M.D., and Shunro ENDO, M.D.

Department of Neurosurgery, University of Toyama, Toyama, Japan

Summary: To evaluate complications and their prevention in endovascular treatment of dural arteriovenous fistulas (AVFs), we analyze the medical records of 105 patients (47 men 58 women, mean age of 64.2 years) treated with endovascular procedures from 1990 to 2003 in our clinic. Dural AVF was located at the cavernous sinus in 43 patients, transverse-sigmoid sinus in 43, and other regions in 19. There were 201 procedures, including 97 transarterial embolizations (TAE), 84 transvenous embolizations (TVE), 17 surgical TVEs, and 3 sinoplasties.

Twelve complications were recorded in 10 patients (3 cavernous sinus, 5 transverse-sigmoid sinus, and 2 craniocervical junction lesions). The complications were divided into 4 categories: wrong strategy (1 case), venous thrombosis (2 cases), procedural error (7 cases), and general condition (1 case; pulmonary embolism).

One of the superficial middle cerebral veins was obliterated after coiling of the cavernous sinus in 1 patient, resulting in a mild transient hemiparesis (wrong strategy). The syndrome of paradoxical worsening occurred in 1 patient with cavernous sinus dural AVF after TAE (venous thrombosis of the central retinal vein). One patient with sigmoid sinus dural AVF suffered long-lasting dizziness after TVE. Ipsilateral endolymphatic hydrops were observed and speculated to be a causative factor of the patient's dizziness (venous thrombosis of the inner ear). The procedural error included trigeminal nerve palsy due to excess coil packing (1 case in TVE), ischemic cranial neuropathy (3 cases in TAE), and migration of the embolic materials via the feeding arterial collateral network (3 cases in TAE).

Morbidity and mortality were 4.8% and 1.0%, respectively. We discuss causes and preventive measures.

Key words:

- dural arteriovenous fistula
- endovascular treatment complication
- transarterial embolization
- transvenous embolization

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 34: 91-95, 2006

はじめに

硬膜動静脈瘻の治療成績は脳血管内治療の進歩とともに飛躍的に向上した。治療戦略を練るためには本疾患の複雑な血行動態を的確に把握することが重要であり、その結果選択される手技は経動脈的塞栓術 (TAE)、経静脈的塞栓術 (TVE)、外科手技や放射線療法との併用療法など、状況によりさまざまである。治療者の技量が求められる疾患でもあり、起こりうるさまざまな合併症への対策も重要である。われわれはこれまでに血管内治療を施行した頭蓋内および脊髄硬膜動静脈瘻症例の記録を調査し、治療により生じた合併症について検討するとともに、その対策について考察した。

対象・方法

1990年から2003年までに当教室で経験した145例の頭蓋内および脊髄硬膜動静脈瘻症例のうち、血管内治療を施

行した105例を対象とした。男性が47例、女性58例で、年齢は45歳から87歳、平均 64.2 ± 9.6 歳であった。これら105例について、発生部位、治療手技、治療結果、治療合併症、転帰をretrospectiveに分析した。合併症についてはカテゴリー (治療戦略、治療手技、静脈血栓症、全身性) にわけて原因を分析した。また、転帰はGOS (Glasgow outcome scale) で評価した。

結 果

105例に対し192件、201手技 (transarterial embolization (TAE): 97手技, transvenous embolization (TVE): 84手技, surgical TVE⁴⁾⁵⁾: 17手技, 静脈洞拡張術: 3手技) の血管内治療を施行した。

部位別では海綿静脈洞部が43症例 (69件, TAE: 15手技, TVE: 52手技, surgical TVE: 3手技)、横・S状静脈洞部が43症例 (89件, TAE: 51手技, TVE: 31手技, surgical TVE: 12手技, 静脈洞拡張術: 3手技)、その他の部

Table 1 Number of cases, sessions, and procedures

Location	Case	Session	Procedure				
			TAE	TVE	sTVE	PTS	total
CS	43	69	15(1)	52(2)	3	0	70
TSS	43	89	51(5)	31(1)	12	3	97
others	19	34	31(3)	1	2	0	34
total	105	192	97(9)	84(3)	17	3	201

CS: cavernous sinus, PTS: percutaneous transluminal sinoplasty, sTVE: surgical transvenous embolization
TAE: transarterial embolization, TSS: transverse-sigmoid sinus, TVE: transvenous embolization
() number of complications

Table 2 Complications, causes, and outcome

Case	Age	Sex	Location	Procedure	Material	Complication	Causes of complication	Category	GOS
1	57	F	CS	TVE	FPC	SMCV occlusion	failed strategy	strategy	GR
2	72	F	CS	TAE	FPC	IOP elevation, visual impairment	thrombosis of the SOV	venous thrombosis	MD
3	55	M	CS	TVE	DC	trigeminal nerve impairment	excessive packing	procedural	MD
4	63	F	TSS	TAE	PVA	facial palsy	ischemic cranial neuropathy	procedural	MD
				TAE	PVA	visual impairment	migration via the dangerous anastomosis	procedural	MD
5	65	M	TSS	TAE	NBCA	lung embolism	venous thrombosis	general	D
6	63	M	TSS	TAE	NBCA	lower cranial nerve palsy	ischemic cranial neuropathy	procedural	GR
7	72	M	TSS	TAE	NBCA	lower cranial nerve palsy	ischemic cranial neuropathy	procedural	GR
8	52	F	TSS	TVE	DC	dizziness	venous thrombosis in the inner ear ?	venous thrombosis	GR
9	52	F	CCJ	TAE	NBCA	asymptomatic NBCA migration	migration via the dangerous anastomosis	procedural	
				TAE		groin hematoma (contralateral)	previous puncture (diagnostic angiogram)		PVS
10	65	M	CCJ	TAE	NBCA	NBCA migration	migration via the feeding arterial network	procedural	SD

CCJ: craniocervical junction, CS: cavernous sinus, DC: detachable coil, FPC: free platinum coil, GOS: Glasgow outcome scale, IOP: intraocular pressure, NBCA: n-butyl-cyanoacrylate, PVA: polyvinyl alcohol, SOV: superior ophthalmic vein, SMCV: superficial middle cerebral vein, TAE: transarterial embolization, TSS: transverse-sigmoid sinus, TVE: transvenous embolization

Fig. 1 left: right vertebral angiogram showing dural AV fistula at the craniocervical junction, center: superselative injection of the main feeding artery, right: schematic view of NBCA migration to the vertebral artery via the fistula and another feeding artery.

位としては上矢状静脈洞部5例，頭蓋頸椎移行部4例，頭蓋円蓋部3例，テント部1例，辺縁静脈洞部1例，胸腰仙部脊髄5例で，これら19例には34件(TAE: 31手技，TVE: 1手技，surgical TVE: 2手技)の血管内治療を施行した(Table 1)。

手技に伴う合併症は10例12件(手技)で発生した。その内訳は下記に提示したごとくTAEで9件，TVEで3件であった。

合併症の詳細(Table 2)

1. 57歳女性：海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻(TVE)。

右海綿静脈洞全体をコイルにて充填したところ，右浅中大脑静脈が閉塞し，右側頭葉皮質下に小さな静脈性梗塞をきたした。軽い一過性の左麻痺が出現した。本症例の右浅中大脑静脈は術前から病側の海綿静脈洞に順行性に還流しており，sphenopetrosal veinやsphenobasal veinなど海綿静脈洞の迂回路⁶⁾となるような静脈は発達していなかった。

2. 72歳女性：海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻(TAE)。

流入動脈をコイルにて閉塞後，眼圧亢進，視力低下をきたした(paradoxical worsening⁷⁾)。視力低下は永続性であった。

3. 55歳男性：海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻(TVE)。

外転神経麻痺を呈する動静脈瘻で，2回のTVEにより同症状は消失したが，術後，同側三叉神経第一枝の永続性知覚脱失をきたした。コイルの過剰塞栓が原因と推測された。

4. 63歳女性：横・S状静脈洞部硬膜動静脈瘻(TAE)。

中硬膜動脈のpetrosquamous branchをPVA particle (サイズ：250-400micron)で閉塞後，同側の遅発性顔面神経麻痺をきたした。別のセッションで浅側頭動脈をPVA particleにて閉塞後，同側の視力低下をきたした。眼科の精査にて網膜中心動脈へのPVA particleの迷入が確認された。顔面神経麻痺，視力低下はいずれも永続性であった。

5. 65歳男性：横・S状静脈洞部硬膜動静脈瘻(TAE)。

NBCAによる流入動脈塞栓術を施行した。翌日と7日後に肺塞栓症を合併し死亡した。

6. 63歳男性：横・S状静脈洞部硬膜動静脈瘻(TAE)。

上行咽頭動脈をNBCAにて塞栓後，一過性の軽い下位脳神経麻痺(嗄声，嚥下障害)をきたした。

7. 72歳男性：横・S状静脈洞部硬膜動静脈瘻(TAE)。

上行咽頭動脈をNBCAにて塞栓後，一過性の軽い下位脳神経麻痺(嗄声，嚥下障害)をきたした。

8. 52歳女性：横・S状静脈洞部硬膜動静脈瘻(TVE)。

isolates sinusを呈する動静脈瘻に対し，閉塞部にカテーテルを通すことにより経皮的経静脈的塞栓術を施行した。動静脈瘻は完全に閉塞したが，術後，動揺性のめまい感が長期間残存した。耳鼻科の精査により同側の内リンパ水腫が指摘され，静脈洞閉塞による内耳の静脈還流障害が疑われた。

9. 52歳女性：頭蓋頸椎移行部硬膜動静脈瘻(TAE)。

左後頭動脈に注入したNBCAが右椎骨動脈(V2部)に迷入した。NBCAはV2部に停留し，拍動性に動揺していたため，右椎骨動脈本幹を迷入部の中枢側でコイルにより閉塞した。無症状であった。左大腿の穿刺部位を圧迫止血し

Table 3 Complication and morbidity-mortality rate

	Total number	Complications	Complication rate (%)	Morbidity (%)	Mortality (%)
total cases	105	10	9.5	4.8	1.0
CS	43	3	7.0	4.7	0
TS	43	5	11.6	2.3	2.3
CCJ	4	2	50.0	50.0	0
others	19	0	0	0	0
total procedure	201	12	6.0		
TAE	97	9	9.3		
TVE	84	3	3.6		
others	20	0	0		

CCJ: craniocervical junction, CS: cavernous sinus, TAE: transarterial embolization, TSS: transverse-sigmoid sinus, TVE: transvenous embolization

終了した。翌日、診断のために3日前に穿刺した右大腿部より大量の出血(穿刺部から後腹膜まで)をきたし、植物状態となった。

10. 65歳男性：頭蓋頸椎移行部硬膜動静脈瘻(TAE)。

右椎骨動脈V3部から出る流入動脈に注入したNBCAが、動静脈瘻を介してV2部から出る流入動脈に逆行性に迷入し(Fig. 1)、右椎骨動脈および左後大脳動脈を閉塞した。永続性の下位脳神経麻痺と右片麻痺を後遺した。

合併症のまとめ(Table 3)

105症例に対する201手技の血管内治療において、10例、12件の合併症が生じた。合併症発生率は全体で9.5%、morbidityは5例(4.8%)、mortalityは1例(1.0%)であった。

部位別でみると、海綿静脈洞部では全体で3例(7.0%)に生じ、morbidityは2例(4.7%)、mortalityは0であった。横・S状静脈洞部では全体で5例(11.6%)に生じ、morbidityは1例(2.3%)、mortalityは1例(2.3%)であった。その他の部位で合併症が生じたのは頭蓋頸椎移行部で、発生率は50%(2例)、morbidityは50%、mortalityは0であった。

手技別でみると全体では201件中12件(6.0%)で合併症が生じた。TAEでは97件中、9件(9.3%)で発生し、その中で塞栓物質が原因で生じたものは、脳神経栄養枝の障害が3件、吻合枝を介する迷入が3件であった。TVEでは84件中3件(3.6%)に発生し、2件は静脈還流障害が原因、1件は過剰塞栓が原因と考えられた。surgical TVE, sinoplastyでは合併症は生じなかった。

考 察

105例、201件の血管内治療で生じた10症例/12件の合併症を原因別に分けると、治療戦略に誤りがあったもの1件(症例1/脳静脈閉塞)、流出静脈側の血栓症2件(症例2/眼窩内静脈血栓症、症例8/内耳静脈?)、全身の要因(症例

5/肺塞栓症)、および手技に関連したもの(症例3、4、6、7、9、10)であった。

戦略の誤りと判断された症例1の合併症は脈管解剖学の熟知により回避しなければならない初歩的なものである。

流出静脈側の血栓症が原因となった2例はヘパリンの持続投与により回避できる可能性はあるが、現時点ではコンセンサスはない。症例2はいわゆる paradoxical worsening⁷⁾と報告されているもので、TAEにより動静脈瘻が閉塞されたにもかかわらず、眼窩内の進行性静脈血栓症のために眼症状がかえって悪化する現象である。また症例8でみられた内リンパ水腫は、前庭静脈(下錐体静脈洞に還流)あるいは内リンパ囊の静脈(S状静脈洞に還流)の還流障害が疑われる。

症例5の術後肺塞栓症は、血管内治療後を問わず安静臥床を必要とする症例を扱う以上、なんとしても回避すべき合併症である。1998年に本例を経験して以来、われわれの施設では原則として血管内治療の術後12時間はヘパリンを持続投与し、離床までは下肢に弾性包帯を装着している。

手技が原因となった6件の合併症は次の3群に分類される；(1) TVEにおける過剰塞栓(症例3)、(2) TAEによる脳神経栄養枝の虚血(症例4、6、7)、(3) 流入動脈の吻合枝を介した塞栓物質の迷入(症例4、9、10)。

(1) 過剰塞栓による脳神経麻痺は特に海綿静脈洞部で観察され、塞栓中の圧の上昇や機械的圧迫などが原因¹⁾と考えられている。血栓性の高い繊維付きプラチナコイルなどを適宜使用することにより過剰塞栓を防ぐことが可能と思われる。

(2) 脳神経栄養枝の虚血および吻合枝からの迷入は特に外頸動脈系のTAEに多い合併症で、本報告でも小さな粒子であるPVA particle(サイズ：250–400 micron)や、液体塞栓物質のNBCAで生じている。脳神経栄養枝の確認

はリドカインテストである程度可能³⁾であるが、治療中ベッド上で臥床のままテストを行うため、われわれの経験では特に下位脳神経の評価が甘くなりがちである。最近には内視鏡を併用し、咽喉頭と声帯の動態を確実に評価できるよう努力している。

(3) 吻合枝を介した塞栓物質の迷入はcatastrophicな合併症を生ずるにもかかわらず、塞栓前にその存在を視認することが困難な場合が多く、最も危険で手ごわい現象である。塞栓前の撮影も、リドカイン/アミタールテスト³⁾も予知に完全ではなく、解剖を熟知し、塞栓中にチャンネルが開くという前提を常に持ちながら動注を行うことが重要と思われる。外頸動脈-内頸動脈間、および外頸動脈-椎骨動脈間のいわゆるdangerous anastomosisに関する認識は基本的かつ非常に重要である。われわれが経験した症例4の合併症は浅側頭動脈前頭枝と眼動脈との吻合を介し、PVA particleが網膜中心動脈を誤閉塞したものである。また動静脈瘻を介して複数の流入動脈間に形成される吻合枝の存在も重要であり、特に流入動脈の距離が短いものは危険である。症例10(Fig. 1)は典型例で、注入されたNBCAが小さな瘻を瞬時に閉塞したのち、ごく短時間で他の流入動脈を逆行し、術者が気づかぬうちに椎骨動脈本幹に迷入した。このようにcriticalな動脈(本例では椎骨動脈)と動静脈瘻の距離が短い場合、逆行/迷入したNBCAを瞬時にとらえて注入を中止するのは非常に困難で、もはや特殊な技能とさえいえる。一般的にはこのような症例は血管内治療の適応としないのが無難と考えられる。

以上は筆者らが経験した合併症の分析と対策である。これら以外に念頭におくべき重要な合併症として、TVE術中の脳内出血²⁾があげられる。TVEにより罹患静脈洞の

流出路を閉じる過程で次第に静脈洞圧が上昇し、uncal vein, petrosal veinなど脳静脈への逆行性還流が増加して静脈性脳内出血をきたすcatastrophicな合併症である。TVEで罹患静脈洞の流出路を閉塞していく場合、危険なルートから順に(優先的に)閉じることにより防ぎうる合併症である。

以上、硬膜動静脈瘻の血管内治療に伴う合併症についてわれわれの経験を報告し、その対策について考察した。

文 献

- 1) Aihara N, Mase M, Yamada, *et al*: Deterioration of ocular motor dysfunction after transvenous embolization of dural arteriovenous fistula involving the cavernous sinus. *Acta Neurochir (Wien)* 141: 707-709, 1999
- 2) Arai K, Nakahara I, Taki W, *et al*: A case of cavernous dural arteriovenous fistula resulting in intracerebral extravasation during transvenous embolization. *No Shinkei Geka* 25: 733-738, 1997
- 3) Deveikis JP: Sequential injections of amobarbital sodium and lidocaine for provocative neurologic testing in the external carotid circulation. *AJNR Am J Neuroradiol* 17: 1143-1147, 1996
- 4) Endo S, Kuwayama N, Takaku A, *et al*: Direct sinus packing of the isolated sinus in patients with dural arteriovenous fistulas of the transverse-sigmoid sinus. *J Neurosurg* 88: 449-456, 1998
- 5) Kuwayama N, Endo S, Kitabayashi M, *et al*: Surgical transvenous embolization of a cortically draining carotid cavernous fistula via a vein of the sylvian fissure. *AJNR Am J Neuroradiol* 19: 1329-1332, 1998
- 6) 桑山直也, 遠藤俊郎: 脳神経外科大系, 8. 出血性脳血管障害, 硬膜動静脈瘻, 中山書店, 東京, 2004, pp346-359
- 7) Nagy ZZ, Nemeth J, Suveges I, *et al*: A case of paradoxical worsening of dural-sinus arteriovenous malformation syndrome after neurosurgery. *Eur J Ophthalmol* 5: 265-270, 1995