Leptomeningeal venous drainageを有するが、 局所脳血流量検査で低灌流域を示さなかった 硬膜動静脈瘻の検討

中谷 充, 川口 務, 竹内 誠

A Study of Dural Arteriovenous Fistula with Leptomeningeal Venous Drainage and No Low Perfusion Area by CBF SPECT Study

Mitsuru NAKATANI, M.D., Tsutomu KAWAGUCHI, M.D., and Satoru TAKEUCHI, M.D.

Department of Neurosurgery, Hakodate Red Cross Hospital, Hakodate, Hokkaido, Japan

Summary: When dural arteriovenous fistula (DAVF) is associated with leptomeningeal venous drainage (LMVD), most cases have venous hypertension and concomitant venous congestion in the same areas due to reduced venous circulation. On the other hand, some cases in the DAVF with LMVD have no low-perfusion area. We studied this phenomenon. The subjects were 25 patients with DAVF. Of them, 16 cases had LMVD. Eleven had a low-perfusion area but 5 had no low-perfusion area. We analyzed this phenomenon in 5 cases. Two cases had anterior cranial fossa DAVF, 2 had tentorium DAVF, and 1 had transverse-sigmoid sinus DAVF. The characteristics of these DAVF are: 1) extra-sinusal type or pure leptomeningeal venous drainage, 2) low shunt flow, 3) existence of accessory route.

Key words:

- ・ dural arteriovenous fistula
- ・ venous ischemia
- ・ leptomeningeal venous drainage
- ・ CBF
- ・ SPECT

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 35: 119-123, 2007

はじめに

危険な dural arteriovenous fistula (DAVF) として, leptomeningeal venous drainage (LMVD) の存在が指摘されている¹⁻³⁾⁵⁻⁷⁾¹⁵⁾. その理由のひとつに, LMVD を伴った DAVF では, その領域に一致して低灌流域が存在し, 静脈性脳虚血をきたすことが知られている⁸⁾⁹⁾¹¹⁾¹²⁾¹⁷⁾. しかし, LMVD を伴った DAVF においても, 低灌流域を示さないものも存在する. 本研究では, LMVD を有する

DAVF で低灌流域を示さなかったものに着目し検討考察する.

対象および結果

¹²³I-iodoamphetamine single photon emission computed tomography (¹²³I-IMP SPECT) を用い局所脳血流量検査を施行した DAVF は 25 症例である. その部位別内訳は, 前頭蓋窩 3 例, 海綿静脈洞 6 例, 小脳テント 3 例, 横 S 状静脈洞 11 例, その他 2 例である. これらの DAVF 25 例中,

Table 1 Clinical summary of 5 cases without low perfusion area in dural arteriovenous fistula with leptomeningeal venous drainage

Case	Age/ Sex	Location	Symptom	VA	Draining vein	Accessory route	PPP	Sinus occlusion
1	55/ M	anterior cranial fossa	headache	—	LMVD → sinus	+	—	none
2	67/ M	anterior cranial fossa	incidental (infarction)	—	LMVD → sinus	+	—	none
3	37/ M	tentorium	headache	+	Galen → LMVD + sinus	—	—	left TS
4	70/ F	tentorium	headache tinnitus	+	LMVD → sinus	+	—	none
5	49/ M	transverse- sigmoid sinus	headache	—	LMVD → sinus	+	—	none

VA: venous aneurysm, PPP: pseudophlebitic pattern

Fig. 1 A) B) C) Right internal carotid angiograms demonstrating DAVF at the anterior cranial fossa fed by the anterior ethmoidal artery. Main drainage was olfactory vein into the cavernous sinus. Pseudophlebitic pattern (PPP) was not seen in the venous phase. D) ^{123}I -HMP SPECT showing no abnormality in the right frontal lobe.

A | B | C | D

LMVDを有したDAVFは16症例であった。そのうち11例はLMVDに一致した領域で低灌流域を認めたが、5例では低灌流域を認めなかった。この5症例を本研究の対象とする(**Table 1**)。部位別の内訳は、前頭蓋窩2例、小脳テント2例、横静脈洞1例である。シャント量は、小脳テントの2症例はhigh flowであったが、他の3症例はlow flowであった。5症例全例で、Willinskyらが報告したpseudophlebitic pattern (PPP) (静脈性高血圧に伴う静脈性脳虚血を脳血管撮影で静脈の屈曲蛇行および拡張としてとらえたもの)¹⁷⁾を認めたものはなかった。また、Kaiらが報告した accessory route (DAVFの leptomeningeal vein (LMV)が、明瞭に静脈洞に流出するもの)⁹⁾は、5例中4例に及んだ。なお、小脳テントの2症例では静脈瘤が存在した。各部位における代表症例を提示する。

代表症例

〈前頭蓋窩DAVF：症例1〉55歳男性。約1カ月持続する前頭部を中心とする頭痛があり当科を受診した。意識清明で、神経脱落症状はなかった。3D-CTAおよびMRIで右前頭葉に前頭蓋窩DAVFを示唆する血管拡張を認めた。DSAでは、篩骨動脈を流入血管とする前頭蓋窩DAVFを認めた(**Fig. 1A, B**)。これは、嗅静脈を経て海綿静脈洞に流出していた。静脈相では、PPPは認められなかった(**Fig. 1C**)。 ^{123}I -HMP SPECTにおいて、右前頭葉下面に低灌流域は認められなかった(**Fig. 1D**)。治療は、両側前頭開頭術による流出静脈離断術を行った。

〈小脳テントDAVF：症例4〉70歳女性。10年来の頭痛があり、最近、拍動性の頭痛が増悪し、当院を受診した。意識清明で、神経脱落症状はなかった。MRIではガレン大静脈近傍部に血管拡張性病変を認めた。DSAでは、多

Fig. 2 A) B) Right vertebral angiogram showing tentorial DAVF with varix. Pseudophlebitic pattern (PPP) was not seen. C) D) MRA and 3D-CTA showing not the Galenic aneurysm, but the varix on the superior cerebellar vein. E) Scheme demonstrating tentorial DAVF and the varix on the superior cerebellar vein.

A	B	C
D	E	

数の流入血管を有する小脳テント DAVF を認めた (Fig. 2A). 流出血管は上小脳静脈で静脈洞交会に流出し, varix を伴っていた. 両側の内頸動脈撮影では, 静脈相で PPP は認められず, 直静脈洞は明瞭に描出されていた (Fig. 2B). MRV および 3DCTV では, varix はガレン大静脈瘤ではなく, 上小脳静脈に存在していることが明瞭となり, 順行性の直静脈洞は, 上小脳静脈の上方に存在していた (Fig. 2C, D, E). ^{123}I -IMP SPECT では, 小脳上面に低灌流域はなく, ダイアモックス負荷試験による血管拡張能も良好であった (Fig. 3A, B). 治療はガンマナイフ療法を行った.

〈横静脈洞 DAVF : 症例 5〉49 歳男性. 頭頂部を中心とした痛みが出現し, 嘔気を伴い当科を受診した. 意識は清明, 神経脱落症状は認められなかった. MRI では明らかな異常はなかった. DSA では, 主に中硬膜動脈を流入血管とする横静脈洞 DAVF を認めた. これは, 皮質静脈のみに流出し, 最終的には上矢状洞に流出していた (Fig. 4A, B). なお, 罹患部位の静脈洞は開存していた (Fig. 4C). いわゆる pure leptomeningeal venous drainage を有する横静脈洞 DAVF と考えられた. ^{123}I -IMP SPECT では, 右後頭葉に低灌流域は認められず (Fig. 4D), $^{99\text{m}}\text{Tc}$ human serum albumin single photon emission computed tomography ($^{99\text{m}}\text{Tc}$ -HSA SPECT) による局所脳血液量検査でも, 右後頭葉に脳血液量の増加も認められなかった

Fig. 3 Upper panel: ^{123}I -IMP SPECT (REST), Lower panel: ^{123}I -IMP SPECT (Diamox). ^{123}I -IMP SPECT (REST) showing no low perfusion area in the upper cerebellum and ^{123}I -IMP SPECT (Diamox) demonstrating no abnormality.

A	B
C	D

Fig. 4 A) B) Right external carotid angiograms demonstrating TS DAVF with the pure leptomeningeal venous drainage. C) Right internal carotid angiogram showing good patency of right transverse-sigmoid sinus. D) ^{123}I -HMP SPECT showing no low perfusion area in the right occipital lobe. E) $^{99\text{m}}\text{Tc}$ -HSA SPECT showing no abnormality in the right occipital lobe.

A	B	C
D	E	

(Fig. 4E). 治療は、後頭開頭術を行い術中DSA下に流出静脈離断術を行った。

考 察

Awadらは、aggressive typeのDAVFとして、流出静脈に皮質静脈を有するもの、静脈瘤を有するもの、ガレン静脈に流出するものをあげている¹⁾。LMVDを伴ったDAVFにおける病態を示す(Fig. 5)。一方で、流出するLMVに静脈瘤を伴い、これが出血の原因となる危険性がある³⁾⁷⁾⁸⁾。一方で、LMVDを伴ったDAVFでは、その領域に一致して低灌流域を示し、静脈性脳虚血をきたす危険性がある。この病態について、Willinskyらは、脳血管撮影の静脈灌流に着目しPPPとして報告した¹⁷⁾。また、MRIの変化について、T2強調画像で高信号をきたし、病態の進行に応じてGd-DTPAによる造影効果があることも最近報告されている¹⁶⁾。さらにこのような静脈性脳虚血をきたしたDAVFの脳循環動態について、Iwamaらは、PETを用いて、局所脳血流量は低下し局所脳血液量は増加することを明確に示した⁸⁾。

しかし、LMVDを伴っていても低灌流域を示さないDAVFも存在する。今回の研究から、このような所見を示した5症例から得られた3点の特徴について述べる。

1) 存在部位は、前頭蓋窩2例、小脳テント2例と5例

Fig. 5 Algorithm showing pathophysiology of DAVF draining into the leptomeningeal vein.

中4例が、静脈洞と関係のないextrasinusal typeであった。また、横静脈洞 DAVFの症例も静脈洞閉塞を伴っていないPLMVDを有するタイプであった。これらのことから、静脈洞と無関係に存在すること、あるいは静脈洞閉塞を伴っていないことがその特徴としてあげられる。LMVDを伴ったDAVFで、静脈洞閉塞が存在する場合は、静脈灌流がより障害されると考えられる。

2) 5例中3例でシャント量が少なかった。シャント量が少なければ、その領域に静脈性高血圧をきたすことが少なく静脈性脳虚血を惹起しにくいと考えられる。

3) 5例中4例にaccessory routeを認められた。accessory routeは、DSAでLMVに流出したものが最終的に静脈洞に流出することが確認される。これに対し、accessory

route がなければ、その領域に静脈うっ滞をきたしやすく、静脈性脳虚血が生じると考えられる。Kai らが示した accessory route の存在は重要な所見と考えられる⁹⁾。

逆にこれら3点の特徴を有していても、低灌流域を示す場合が存在することは既知であり¹⁰⁾¹³⁾、今後より一層の研究が待たれる。

最後に治療について述べる。DAVF では、grade が進行したり⁴⁾、LMV に新たに静脈瘤が形成されることも報告されている¹⁴⁾。現段階では、血行動態の変化や静脈瘤の形成を推測するのは困難である。よって、LMVD を伴った DAVF は、静脈性脳虚血を伴っていない無症候性の場合でも、治療を考慮すべきである。

結 語

1. LMVD を有しながら低灌流域を示さなかった DAVF 5 症例について報告した。
2. これらの症例では、1) 静脈洞と無関係に存在する、静脈洞閉塞を伴っていない、2) shunt 量が少ない、3) accessory route が存在する、以上3点の特徴が認められた。

文 献

- 1) Awad IA, Little JR, Akrawi WP: Intracranial dural arteriovenous malformations: Factors predisposing to an aggressive neurological course. *J Neurosurg* 72: 839-850, 1990
- 2) Borden JA, Wu JK, Shucart WA: A proposed classification for spinal and cranial dural arteriovenous fistulous malformations and implications for treatment. *J Neurosurg* 82: 166-179, 1995
- 3) Cognard C, Gobin YP, Pierot L: Cerebral dural arteriovenous fistulas: Clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. *Radiology* 194: 671-680, 1995
- 4) Cognard C, Houdart E, Casasco A: Long term changes in intracranial dural arteriovenous fistulae leading to worsening in the type of venous drainage. *Neuroradiology* 39: 59-66, 1997
- 5) Collice M, D'Aliberti G, Talamonti G: Surgical interruption of leptomeningeal drainage as treatment for intracranial dural arteriovenous fistulas without dural sinus drainage. *J Neurosurg* 84: 810-817, 1996
- 6) Collice M, D'Aliberti G, Arena O: Surgical treatment of intracranial dural arteriovenous fistulae: role of venous drainage. *Neurosurgery* 47: 56-67, 2000
- 7) Goto K, Sidipratomo P, Ogata N: Combining endovascular and neurosurgical treatments of high-risk dural arteriovenous fistulas in the lateral sinus and the confluence of the sinuses. *J Neurosurg* 90: 289-299, 1999
- 8) Iwama T, Hashimoto N, Takagi Y: Hemodynamic and metabolic disturbances in patients with intracranial dural arteriovenous fistulas: positron emission tomography evaluation before and after treatment. *J Neurosurg* 86: 806-811, 1997
- 9) Kai Y, Hamada J: Correlation between MRI and draining patterns in dural arteriovenous fistulas with leptomeningeal venous drainage. *Acta Neurochir* 142: 413-419, 2000
- 10) 川口 務, 河野輝昭, 大井川秀聡: Pure leptomeningeal venous drainage を有した横-S 状静脈洞硬膜動静脈瘻の一例. 脳神経外科ジャーナル 8: 627-632, 1999
- 11) 川口 務, 河野輝昭, 大浅貴朗: ¹²³I-IMP SPECT を用いた硬膜動静脈瘻における局所脳血流量の検討. 脳と神経 52: 991-996, 2000
- 12) Kawaguchi T, Kawano T, Ooasa T: Classification of venous ischemia with MRI. *J Clin Neurosci* 8(4A): 82-88, 2001
- 13) 川口 務, 河野輝昭, 大浅貴朗: 手術により局所脳血流量の改善を認めた前頭蓋窩硬膜動静脈瘻の一例. 脳神経外科 31: 209-214, 2003
- 14) Kim DK, Eskridge J, Mayberg MR: Progressive aneurysmal degeneration of cortical venous drainage of dural arteriovenous malformations: case report. *Neurosurgery* 41: 673-676, 1997
- 15) Lalwani AK, Dowd CF, Halbach VV: Grading venous restrictive disease in patients with dural arteriovenous fistulas of the transverse/sigmoid sinus. *J Neurosurg* 79: 11-15, 1993
- 16) Willinsky R, terBrugge K, Montanera W, et al: Venous congestion: An MR findings in dural arteriovenous malformations with cortical venous drainage. *AJNR Am J Neuroradiol* 15: 1501-1507, 1994
- 17) Willinsky R, Goyal M, terBrugge K, et al: Tortuous, engorged pial veins in intracranial dural arteriovenous fistulas: Correlations with presentation, location, and MR findings in 122 patients. *AJNR Am J Neuroradiol* 20: 1031-1036, 1999