

## 症例報告

# 経静脈的塞栓術によってくも膜下出血を来した 上錐体静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例

山浦生也<sup>1)</sup> 尾崎 功<sup>2)</sup> 垣田寛人<sup>2)</sup> 崔 永得<sup>2)</sup> 前田行雄<sup>2)</sup>

## Superior petrosal sinus dural arteriovenous fistula resulting in subarachnoid hemorrhage after transvenous embolization: Case report

Ikuya YAMAURA<sup>1)</sup> Isao OZAKI<sup>2)</sup> Hiroto Kakita<sup>2)</sup> Nagayasu SAI<sup>2)</sup> Yukio MAEDA<sup>2)</sup>

1) Department of stroke treatment, Kobe Tokushukai hospital

2) Department of neurosurgery, Ishikiriseiki hospital

### ●Abstract●

**Objective:** Dural arteriovenous fistulas (dAVFs) draining into the superior petrosal sinus (SPS) are rare. This article describes a case of SPS dAVF treated with transvenous embolization, which resulted in subarachnoid hemorrhage.

**Case presentation:** A 65-year-old female presented with a severe headache and floating sensations. CT showed right cerebellar hemorrhage with ventricular perforation. Angiograms revealed innumerable feeders from the tentorial artery of the left internal carotid artery, the left superior cerebellar artery supplying the dAVF at the draining vein and the varix of the SPS and cortical venous reflux via the petrosal vein. We conducted transvenous coil embolization of the draining vein and the varix, and the dAVF disappeared. CT obtained on the next day of the endovascular procedure demonstrated subarachnoid hemorrhage and acute hydrocephalus. It was postulated that because the embolization was performed at the varix and not at the shunt point, the fragile draining vein may have been ruptured due to excessive pressure or that rapid disproportion of venous pressure occurred at the surrounding draining veins during the procedure, causing subarachnoid hemorrhage.

**Conclusion:** We emphasize that accurate identification of the fistula sites and careful embolization with sufficient flow control are necessary in the treatment of dAVF with hemorrhages and dangerous drainages.

### ●Key Words●

dural arteriovenous fistula, endovascular treatment, SAH, superior petrosal sinus

1) 神戸徳洲会病院 脳卒中診療部

2) 石切生喜病院 脳神経外科

<連絡先: 山浦生也 〒655-0017 神戸市垂水区上高丸1-3-10 E-mail: ikuyayamaura@mac.com>

(Received January 17, 2009 : Accepted March 30, 2009)

## はじめに

硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula ; dAVF) の治療は経静脈ルートで瘻孔およびその周囲の流出静脈を閉塞することがスタンダードとされている<sup>1,3,4)</sup>。我々は小脳出血で発症した上錐体静脈洞部 (superior petrosal sinus ; SPS) 硬膜動静脈瘻を経静脈的アプローチのみで治療したところ、経過中にくも膜下出血を来した症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

## 症例呈示

患者: 65歳, 女性.

主訴: 頭痛, めまい.

既往症: 高血圧, 高脂血症, 甲状腺機能低下症で治療中.  
現病歴, 入院時所見: 突然の頭痛, めまいが出現し, 繰り返し嘔吐したため, 救急搬送された. 来院時の意識は Japan coma scale (JCS) 1で, 他に明らかな異常神経所見はなかった.

神経放射線所見および経過: 頭部CT (Fig. 1) にて脳室内穿破を伴う小脳出血を認め, その後閉塞性水頭症が認められ, 意識がJCS10まで低下したので脳室ドレナージを行った. 血腫が吸収された後, 脳室ドレナージを抜去して経過を見ていた. 出血の原因を検討するために行った脳血管撮影でSPS dAVFを認めた. 右内頸動脈海綿静脈洞部tentorial artery, 右上小脳動脈硬膜枝が流入動脈となっており, テント切痕に存在する静脈とそれに連

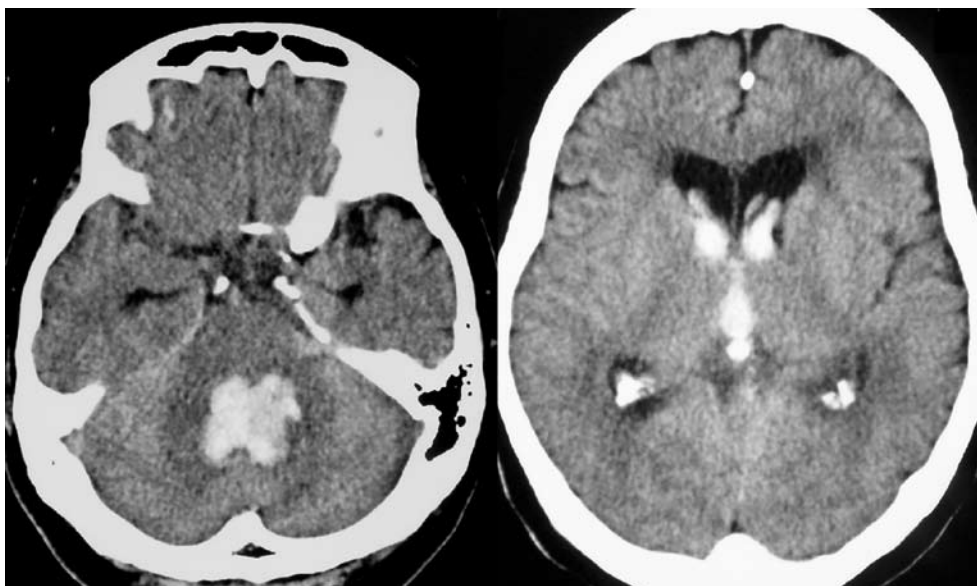


Fig. 1 Initial computed tomography scans show a small hemorrhage in the left cerebellar vermis with ventricular perforation.

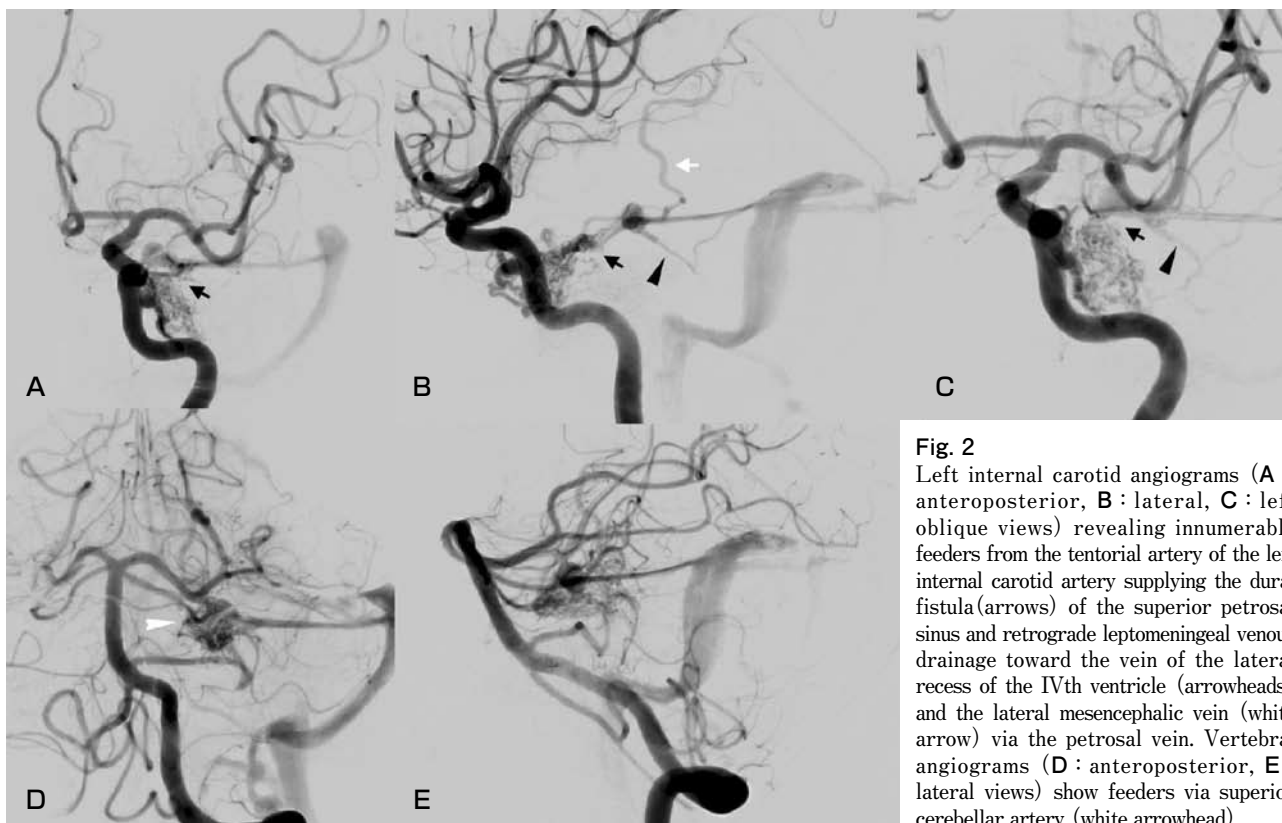
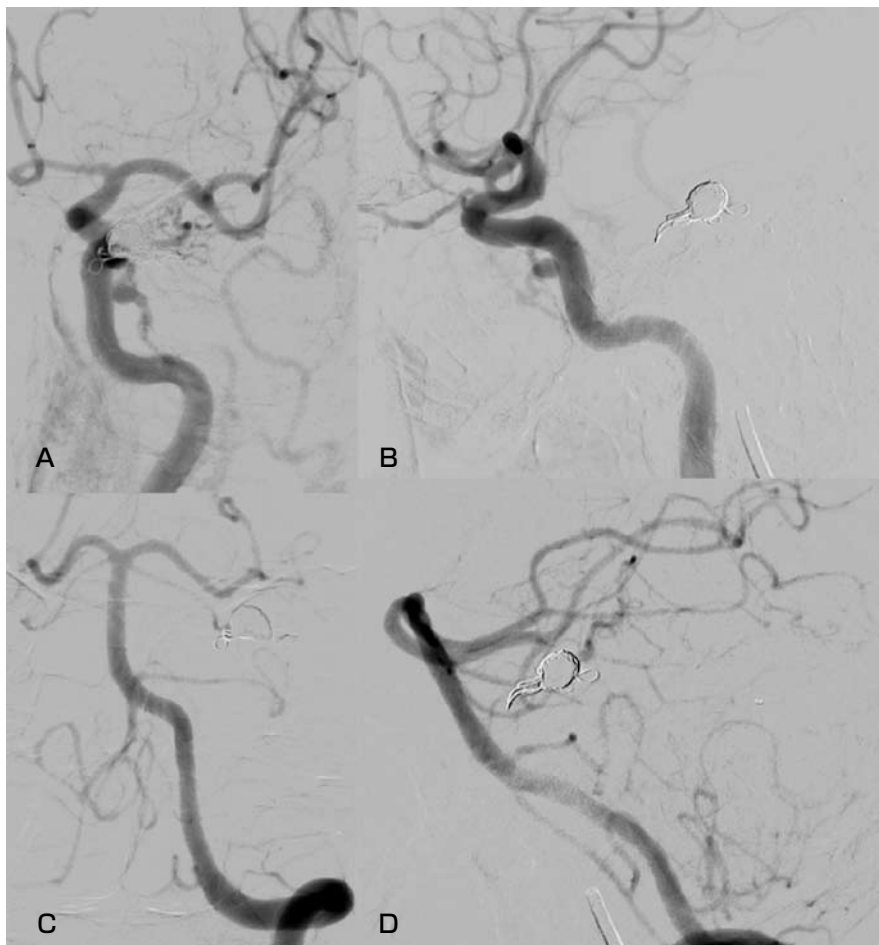


Fig. 2 Left internal carotid angiograms (A : anteroposterior, B : lateral, C : left oblique views) revealing innumerable feeders from the tentorial artery of the left internal carotid artery supplying the dural fistula (arrows) of the superior petrosal sinus and retrograde leptomeningeal venous drainage toward the vein of the lateral recess of the IVth ventricle (arrowheads) and the lateral mesencephalic vein (white arrow) via the petrosal vein. Vertebral angiograms (D : anteroposterior, E : lateral views) show feeders via superior cerebellar artery (white arrowhead).

続する静脈瘤を経由して主にSPSに流出していた。さらに、流出路の一部はpetrosal veinからvein of the lateral recess of the VIth ventricle (VLR4V) やlateral mesencephalic vein (LMV) へleptomeningeal venous drainageしていた (Fig. 2)。外頸動脈系からの流入動脈は存在しなかった。

今回の第4脳室穿破を伴う小脳出血はVLR4Vの流出路が出血したものと推測され、治療の絶対適応と判断した。この症例においては塞栓術が可能な外頸動脈系の関与がなく、経動脈的アプローチでは少なからずリスクを伴うので、経静脈的アプローチのみを選択し、SPSを経由し、



**Fig. 3** Left internal carotid angiograms (A and B) and left vertebral angiograms (C and D) after the procedure showing disappearance of dural fistula. A, C: anteroposterior, B, D: lateral views.

瘻孔部位に至ることができれば、コイル塞栓術で完治させることが可能と考えた。

**経静脈的瘻孔塞栓術：**全身麻酔下に左大腿動脈に動脈シースを挿入し、コントロールの動脈撮影用の（左椎骨動脈、左内頸動脈を写す目的）カテーテルを留置した。右大腿静脈からは6 Fr Guider Softip (Boston Scientific, Natick, MA, USA)と4 Fr CXカテーテル(カテックス, 神奈川)のcoaxial法で左内頸静脈に6 Fr Guider Softipを留置した。子カテーテルとして4 Fr セルリアンG (メディキット, 東京)をS状静脈洞まであげた。さらに孫カテーテルとしてExcelsior-SL10 preshaped c (Boston Scientific, Natick, MA, USA)をTransend EX Platinum (Boston Scientific, Natick, MA, USA)を用いてSPSに挿入し、瘻孔が存在すると考えられた部位よりわずかに下流の静脈瘤にカテーテル先をおいた。離脱型コイルを順次充填し (Trufill DCS Orbit, Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA) 56 cm, GDC 10 Ultrasoft (Boston

Scientific, Natick, MA, USA) 8 cm, 動静脈シャントは消失した (Fig. 3)。麻酔からの覚醒は良好で神経学的にも問題はなかった。ところが翌朝から意識がJCS20まで低下し、頭部CTにてくも膜下出血と急性水頭症を認めた (Fig. 4)。直ちに脳室ドレナージを施行し、意識は速やかに改善した。同日施行した脳血管撮影ではdAVFは消失しており、術直後の血管撮影と何ら変化はなかった。その後の経過で再出血は認めなかった。最終的には脳室腹腔短絡術を行い、軽度の高次脳機能障害を残したが、日常生活が可能なレベルまで改善した。

## 考 察

硬膜動静脈瘻はすべての頭蓋内動静脈短絡病変の10～15%を占め<sup>2)</sup>、そのほとんどが海綿静脈洞や横静脈洞-S状静脈洞に発生する。SPSに発生するものはきわめて稀であり、最近の報告ではdAVFの3～5%程度とされている<sup>3,5)</sup>。また、SPS dAVFを含めテント部dAVFは進

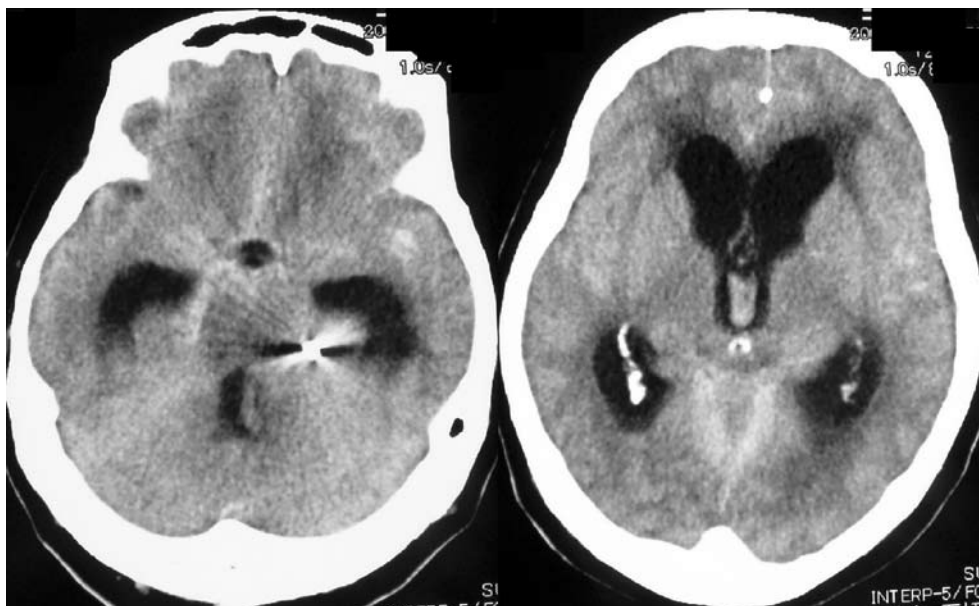


Fig. 4 Computed tomography scans one day after the procedure, indicating subarachnoid hemorrhage and acute hydrocephalus.

行性に症状が悪化することが多く、放置すると90%以上の症例で出血や神経脱落症状を来すと考えられ<sup>2,3,4</sup>、積極的な治療が必要である。硬膜動静脈瘻の成因にはさまざまなものが考えられており、先天的なのか、後天的なものも含めて解明されていない。中年以降に発症するものがほとんどで、最近では後天的な静脈血栓症が原因で静脈洞内圧が上がり、静脈洞壁に存在し、すでに閉塞している動静脈チャンネルが開き動静脈瘻となるという考え方が一般的である。我々の症例でもSPSが合流する直前の横静脈洞は狭窄しており、今回の病変の成因に何らかの関係があるのかもしれない。

一般的にSPS dAVFに特徴的な症状はなく、SPSを逆流して海綿静脈洞、眼静脈を拡張することによる眼症状やpetrosal veinを介して皮質静脈への逆流によっても膜下出血や脳内出血を来すことが報告されている<sup>3,5</sup>。Satoら<sup>6</sup>はdAVFが原因で小脳出血を来した5例の流出路について検討し、petrosal veinを介するVLR4VやLMVへのleptomeningeal venous drainageは非常に危険で、小脳出血はいずれもVLR4Vの破綻が原因であるとされた。また、そのような小脳出血では第4脳室の偏位が軽度で、ほとんどの場合は脳室穿破を認めると特徴付けている。我々の症例では高血圧性の小脳出血を疑わせる高血圧の既往があったものの出血の大部分が第4脳室出血であり、通常の小脳出血と異なるため診断につながった。

dAVFを根治するためには血管内治療、開頭術、放射線治療あるいはそれぞれを組み合わせ最終的に瘻孔を閉塞させることが重要である。我々の症例では内頸動脈海綿静脈洞部のtentorial artery、上小脳動脈硬膜枝を流入動脈とし、テント切痕に存在する静脈とそれに連続する静脈瘤を経由して主にSPSに流出していた。瘻孔部のわずかに下流に存在するこの静脈瘤を中心に経静脈的にコイルで塞栓すれば完治できると判断した。血管内治療では経静脈的アプローチで瞬時にすべて瘻孔を閉塞することができれば根治できるが、流出路が複数存在する場合は瘻孔を閉鎖する過程でそれぞれの流出路に急激な圧の変化が起こり、静脈路が破綻し出血することがある。荒木ら<sup>1</sup>は海綿静脈洞硬膜動静脈瘻の経静脈的塞栓術中に皮質静脈流出路を介した脳内出血を来した症例を報告し、危険な静脈路には十分に注意を払う必要があると述べている。このようなことを予防するためにあらかじめ経動脈的塞栓術でシャント量を減少させておくことが合理的であるが、症例のように内頸動脈から流入動脈が出ている場合や外頸動脈のdangerous anastomosisが存在する場合は塞栓術そのものが安全とは言えない。我々の症例は内頸動脈海綿静脈洞部より分岐するtentorial arteryであり、万が一塞栓物質が内頸動脈に逆流すれば合併症は避けられないため、最初から経静脈的塞栓術のみを行った。全身麻酔で治療を行い、経過中のvital signにも変化はなく、術後の麻酔覚醒も速やかで治療経過に問題

はなかった。術中のビデオからカテーテルやガイドワイヤーによる静脈穿通なども考えにくく、術中出血の可能性は極めて小さいと思われた。ところが、翌日の頭部CTでくも膜下出血と急性水頭症を認めた。術直後および翌日の脳血管撮影ですでにdAVFは消失していることから術後の血行動態の変化による出血が疑われた。荒木らの症例のようにdAVFの存在する静脈を塞栓することで流出静脈群に急激な圧不均衡が起り出血したか、または、瘻孔点の検討が不十分なままSPSに連なる静脈瘤を塞栓しており、静脈瘤のわずかに上流の流出静脈に瘻孔が存在するにもかかわらず、その下流で塞栓したために、この静脈に過剰な圧がかかり出血したものと考えられた。van Rooijら<sup>7)</sup>はテント部dAVFで内頸動脈海綿静脈洞部から分岐するtentorial arteryに対して、内頸動脈をバルーンで一時的に遮断することで、安全に経動脈的塞栓術を行えたことを報告している。彼らはバルーンを置くことにより、microcatheterが安定化し、血流を抑え、逆流を防ぐことができると述べている。今回の症例でもリスクはあるがこのような方法を用いて内頸動脈経由のtentorial artery塞栓術をあらかじめ行っておくことや、あるいはtentorial artery分岐部にバルーンを置くだけでも一時的に血流を抑えることができ、経静脈塞栓術中の出血を防げたかもしれない。出血発症のdAVFで危険な流出路を認めるものでは詳細に瘻孔点を検討した上で可能な限り流入動脈のflow controlを行って、慎重

に塞栓する必要があると考えられた。

## 文 献

- 1) 荒木加寿美, 中原一郎, 滝 和郎, 他: 経静脈的塞栓術中に脳内に造影剤の extravasation を招いた海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例. No Shinkei Geka 25:733-738, 1997.
- 2) Awad IA, Little JR, Akarawi WP, et al: Intracranial dural arteriovenous malformations: factors predisposing to an aggressive neurological course. J Neurosurg 72:839-50, 1990.
- 3) 石原秀章, 石原正一郎, 金澤隆三郎, 他: 経動脈的塞栓術と経静脈的塞栓術を併用して治癒し得た上錐体静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例. No Shinkei Geka 35:1157-1162, 2007.
- 4) Lawton MT, Sanchez-Mejia RO, Pham D, et al: Tentorial dural arteriovenous fistulae: Operative strategies and microsurgical results for six types. Neurosurgery 62: ONS110-ONS125, 2008.
- 5) Ng PP, Halbach VV, Quinn R, et al: Endovascular treatment for dural arteriovenous fistulae of the superior petrosal sinus. Neurosurgery. 53:25-32, 2003.
- 6) Satoh K, Satomi J, Nakajima N, et al: Cerebellar hemorrhage caused by dural arteriovenous fistula: a review of five cases. J Neurosurg 94:422-426, 2001.
- 7) van Rooij WJ, Sluzewski M, Beute GN: Tentorial artery embolization in tentorial dural arteriovenous fistulas. Neuroradiology 48:737-743, 2006.

## 要 旨

JNET 3:29-33, 2009

**【目的】** 上錐体静脈洞 (superior petrosal sinus ; SPS) に発生する硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula ; dAVF) は稀である。小脳出血で発症し、経静脈的塞栓術で治療した後に、くも膜下出血を来したSPS dAVFを報告する。**【症例】** 65歳女性。激しい頭痛と浮動感にて発症し、頭部CTで脳室穿破を伴う小脳出血を認めた。脳血管撮影では内頸動脈海綿静脈洞部tentorial artery, 上小脳動脈から流入し、主にSPSに流出するdAVFを認めた。瘻孔はテント切痕に存在する静脈に集中し、そのすぐ下流に存在する静脈瘤を経て主にSPSに流出していたが、一部は小脳出血の原因と考えられるpetrosal veinへ逆流していた。その静脈瘤を中心に流出路を経静脈的にコイルを用いて閉塞し、dAVFは完全に閉塞することができた。しかし、術後意識レベルが低下し、頭部CTでくも膜下出血と水頭症が認められた。瘻孔点で閉塞せず、わずかにその下流の静脈瘤で閉塞したため両者の間にある脆弱な流出静脈より出血したのか、あるいは静脈瘤を塞栓しているときに下流の流出静脈に急激な圧不均衡が起り出血したと考えられた。**【結論】** 出血発症のdAVFで危険な流出路を認めるものでは、瘻孔点の正確な見極めと十分な動脈側でのflow controlの後に慎重に塞栓術を行う必要がある。