

症例報告

骨変化を伴った海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻：症例報告

高橋 聡¹⁾ 佐久間郁郎¹⁾ 大谷隆浩¹⁾ 古賀 誠¹⁾ 戸村則昭¹⁾
 渡会二郎¹⁾ 柳澤俊晴²⁾ 内藤雄一郎²⁾ 溝井和夫²⁾

Cavernous sinus dural arteriovenous fistula with bone erosion: case report

Satoshi TAKAHASHI¹⁾ Ikuo SAKUMA¹⁾ Takahiro OTANI¹⁾ Makoto KOGA¹⁾ Noriaki TOMURA¹⁾
 Jiro WATARAI¹⁾ Toshiharu YANAGISAWA²⁾ Yuichiro NAITO²⁾ Kazuo MIZOI²⁾

1) Department of Radiology, Akita University School of Medicine

2) Department of Neurosurgery, Akita University School of Medicine

●Abstract●

Objective: A case of cavernous sinus dural arteriovenous fistula (dAVF) with bone erosion is reported.

Case presentation: A 69-year-old female presented with pulsatile tinnitus and diplopia. Cerebral angiography showed multiple fistulas in bilateral cavernous sinuses and a venous pouch adjacent to the left cavernous sinus with venous drainage into bilateral superior ophthalmic veins, as well as cortical venous reflux into the superficial middle cerebral and cerebellar veins. 3-dimensional dynamic CT revealed early filling of bilateral cavernous sinuses, and coronal multi-planar reconstruction images in the bone window demonstrated bone erosion on the dorsum sellae adjacent to the venous pouch. We considered that the bone erosion was caused by both the venous pouch and related vessels of the dAVF. Transvenous coil embolization resulted in disappearance of the dAVF.

Conclusion: The proximity of bone erosion to both fistulous points and venous pouch provided useful adjunctive information regarding angioarchitecture of dAVF and thus facilitated transvenous embolization.

●Key Words●

bone erosion, cavernous sinus, dural arteriovenous fistula, venous pouch

1) 秋田大学医学部 放射線科

2) 同 脳神経外科

<連絡先：高橋 聡 〒010-8543 秋田市本道1-1-1 E-mail: satoshi@doc.med.akita-u.ac.jp>

(Received March 30, 2009 : Accepted May 25, 2009)

緒言

近年、骨変化を伴った頭蓋内の硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula ; dAVF) の報告^{1-4,9,11)} があり、特に大後頭孔近傍のdAVF例で多く認められる。これらの中には、骨内に瘻孔部を有するintraosseous typeが存在し^{3,11)}、骨を含めて瘻孔部を摘出した手術例も報告されており¹¹⁾、骨変化と瘻孔部との関係性を評価することは治療を進める上で、重要である。今回、我々は骨変化を伴った海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

患者：69歳、女性。

主訴：複視。

現病歴：3ヵ月前より拍動性の耳鳴を自覚し、2ヵ月前に耳鳴は改善したが、続いて複視が出現した。症状は改善せず、1ヵ月前に眼科を受診し、眼瞼部に血管性雑音が聴取されたことから、内頸動脈海綿静脈洞瘻(carotid-cavernous fistula ; CCF) が疑われたため、当院に紹介となった。

既往歴：10年前に大腸癌で摘出術を受けた。7年前に脊髄小脳変性症と言われたが、その後、診療を受けていない。

家族歴：特記すべきことなし。

入院時現症：右眼球結膜充血と左外転神経麻痺、軽度の小脳失調症状が認められた。これら以外、特記すべきことなし。

入院時画像検査：

【頭部MRI】：MRAの元画像で、左側優位に両側の海

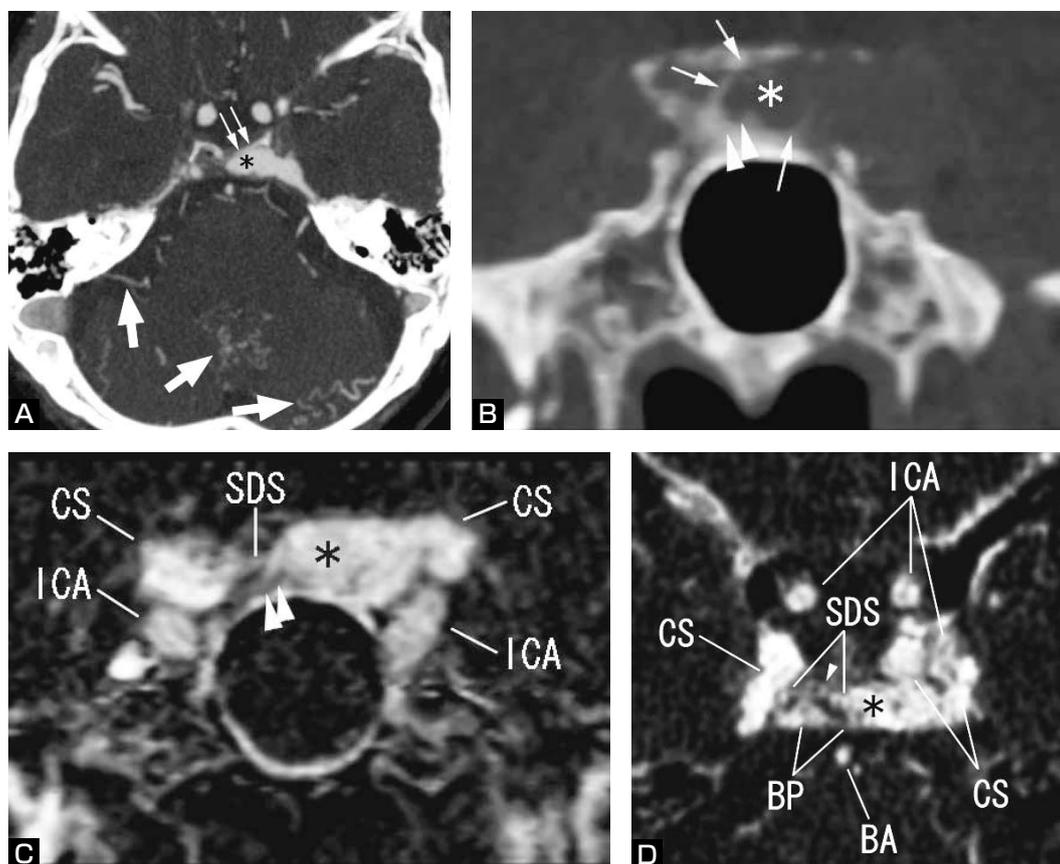


Fig. 1 3-D dynamic CT in the arterial phase. Axial source image (A), coronal multi-planar reconstruction (MPR) image in the bone window (B), both coronal MPR (C) and axial source (D) images after subtraction show early filling of the bilateral cavernous sinuses. Note the venous pouch (asterisk) adjacent to the left cavernous sinus (CS) and bone erosion on left side of the dorsum sellae (arrows). A vessel (arrowheads, C and D) is shown adjacent to the venous pouch and the sinus of the dorsum sellae (SDS), corresponding to both bone erosion (arrowheads, B) and target vessel of the feeders from the right internal maxillary artery (arrowheads, Fig. 2). The sinus of the dorsum sellae is located anterior to the basilar plexus (BP; D). Dilated cerebellar veins (large arrows, A) represent cortical venous reflux via both petrosal veins.
BA: basilar artery, ICA: internal carotid artery

綿静脈洞内のflow related enhancementが観察され、CCFを表していた。左海綿静脈洞内側後方が瘤状に拡張していた。MRAでは両側の上眼静脈や錐体静脈の描出も認められた。小脳皮質静脈の拡張も認められ、これはT2強調像や造影T1強調像でも観察された。脳幹や小脳の脳実質に信号の異常は見られなかった。

【頭部CT】：64列CTを用い、海綿静脈洞を中心とする3-dimensional (D) dynamic CTを撮影した。前腕静脈から造影剤 (Iopamidol 370) を4 ml/秒の速度で計50 ml静注しつつ、テーブル移動することなく、同一箇所を1回1秒の速度で計25回の撮影を行い、4 cm厚のvolume dataを収集した。これによって得られた動脈相の元画像 (Fig. 1A) から3-D CTA, multiplanar reconstruction (MPR)

冠状断像 (Fig. 1B)、骨を除去したサブトラクション冠状断像 (Fig. 1C) と横断像 (Fig. 1D) を作成した。動脈相で両側海綿静脈洞が描出され (Fig. 1A, C, D)、左海綿静脈洞内側後方の静脈瘤に隣接する鞍背のerosionが認められた (Fig. 1A, B)。静脈瘤右端には、右外頸動脈造影正面像 (Fig. 2) で観察される顎動脈からの流入動脈が収束する血管 (Fig. 1C) とそれによるerosion (Fig. 1B) も観察された。

【脳血管造影】：主に両側の顎動脈と中硬膜動脈から流入動脈を受け、両側の海綿静脈洞に瘻孔を有し、両側の上眼静脈や下眼静脈から顔面静脈に流出するhigh flowのdAVFが認められた (Fig. 2, 3)。左海綿静脈洞内側後方に静脈瘤様の拡張が観察され (Fig. 2, 3)、両側顎動



Fig. 2 Right external carotid arteriogram (frontal projection) shows feeding arteries from the internal maxillary artery converging into the vessel (arrowheads) adjacent to the venous pouch (asterisk). Another feeding artery fills a fistula on the inferior aspect of the venous pouch (black arrow), and branches of the right middle meningeal artery fill the fistula of the right cavernous sinus (white arrow).

脈からの流入動脈が同部に複数の瘻孔を形成していた。両側の上錐体静脈洞外側および下錐体静脈洞は閉塞し、両側の錐体静脈や架橋静脈を介して小脳皮質静脈と脳底静脈へ逆流しており、左浅中脳静脈への逆流も認められた。左椎骨動脈造影では、小脳皮質静脈逆流による静脈還流障害を反映して、静脈相でも小脳実質の染まりが遷延し、静脈の描出が極めて不良であった。

治療経過：

全身麻酔下に経静脈性塞栓術を行った。右大腿静脈穿刺で6Frのメディキットガイディングカテーテル (Medikit, Tokyo) を左内頸静脈から左下錐体静脈洞へ進め、Excelsior1018 (Boston Scientific, Natick, MA, USA) を左下錐体静脈洞経由で左海綿静脈洞へ誘導した。マイクロコイル (Detach-11/18, Cook, Bjaerverskov, Denmark) を用いて、最初に、小脳皮質静脈への逆流が顕著であった左錐体静脈側の上錐体静脈洞を塞栓した後、瘻孔が集中している左海綿静脈洞内側の静脈瘤部を塞栓した。静脈瘤部にマイクロコイルを留置している最中、透視下でコイル塊の拍動しているのが観察された。塞栓途中の左右外頸動脈造影 (Fig. 4A, B) では、顎動脈から流入動脈を受けて静脈瘤部に残存する瘻孔に加えて、左右の中

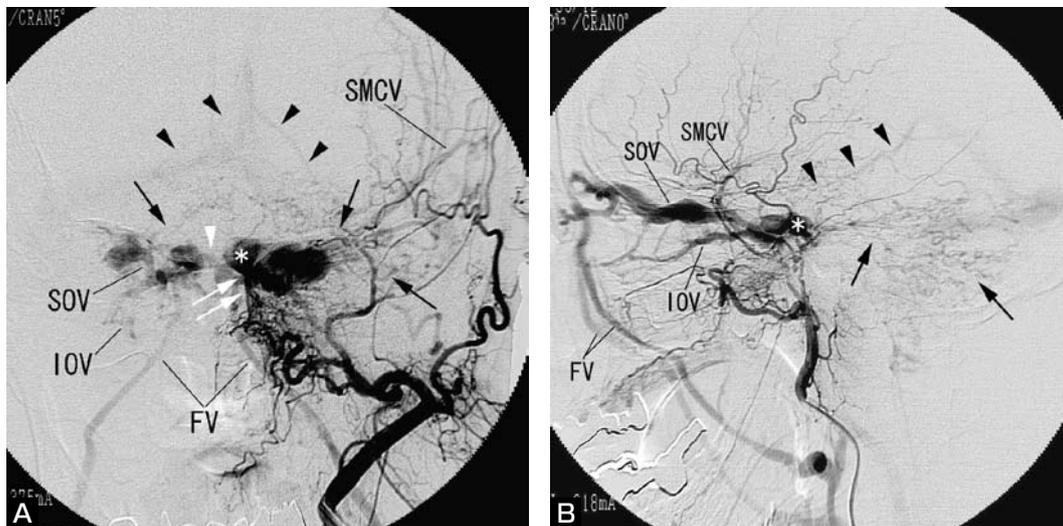


Fig. 3 Left external carotid arteriograms (frontal: **A** and lateral: **B** projections) show dAVF of the left cavernous sinus fed by the foramen rotundum artery (white arrows) and the middle meningeal artery. Branches from the foramen rotundum artery converge into the venous pouch (asterisk) of posteromedial portion of the left cavernous sinus. Venous drainage from the dAVF flows into the left superior ophthalmic (SOV), inferior ophthalmic (IOV) and facial (FV) veins and also into a contralateral anterior drainage route via the sinus of the dorsum sellae (white arrowhead). Other venous drainage flows into bilateral basal veins (black arrowheads) via bridging veins, and cortical venous reflux flows into the left superficial middle cerebral vein (SMCV) and into the cerebellar veins (black arrows) via the bilateral superior petrosal sinuses and petrosal veins.

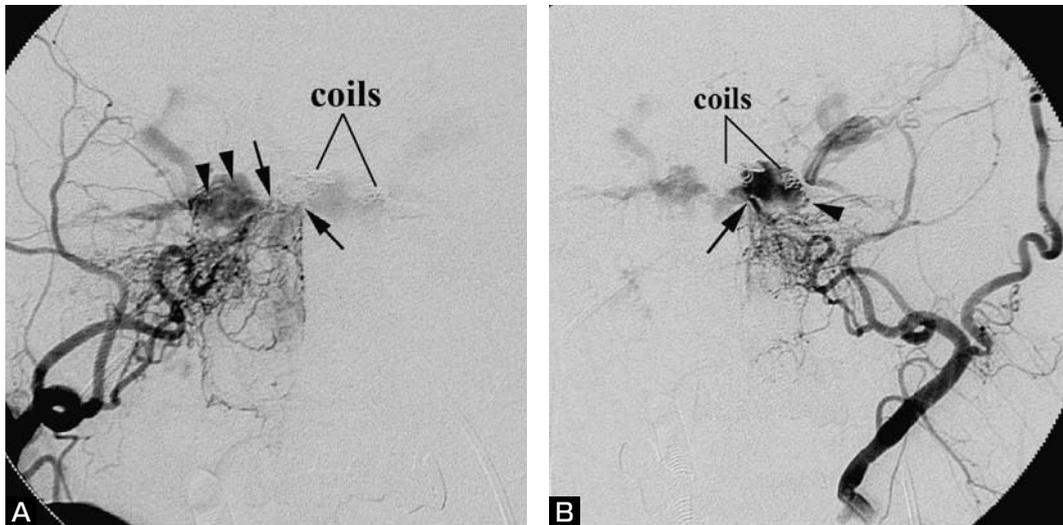


Fig. 4 Right (A) and left (B) external carotid arteriograms (frontal projections) during transvenous embolization. Microcoils are placed in the varix and left superior petrosal sinus. Residual fistulas are shown below the coils of the varix (arrows) filled by both internal maxillary arteries and in both cavernous sinuses (arrowheads) filled by ipsilateral middle meningeal artery.

硬膜動脈を流入動脈とし、両側海綿静脈洞にも瘻孔が認められたため、静脈瘤部のみならず、左右の海綿静脈洞後方のsinus packingをする方針とした。まず、右海綿静脈洞後方の塞栓を企図したが、右上眼静脈側にシャント血流が残存した場合でも、容易に追加塞栓が可能のように、同様のカテーテルシステムをもう一組用意して、左大腿静脈穿刺の上、右下錐体静脈洞経由で右海綿静脈洞から右上眼静脈へ進めたうえで、最初のマイクロカテーテルをsinus of the dorsum sellae経由で瘻孔の残存する右海綿静脈洞後方に進めて、瘻孔部を中心にコイル塞栓した。なお、上眼静脈側に進めた予備のマイクロカテーテルは使用する必要がなかった。その後、マイクロカテーテルを左海綿静脈洞へ誘導し、残存する瘻孔部を中心にコイル塞栓した。こちらは1本のマイクロカテーテルのみ使用し、やや上眼静脈側から塞栓を開始した。結局、計47本のマイクロコイルを用いた塞栓術により瘻孔の消失が得られた (Fig. 5)。直後の右椎骨動脈造影では、術前には描出の不良であった脳幹や両側小脳半球の静脈が静脈相で描出され、静脈還流障害の改善を示していた。

塞栓後、右眼球結膜充血は劇的に改善し、1週間には小脳失調の改善傾向も認められ、退院となった。左外転神経麻痺は3ヵ月後に改善が認められた。

考 察

以前よりdAVFと骨との関係に着目した報告^{6,8)}があり、骨内に瘻孔を有するdAVFは、intraosseous dAVF³⁾あ

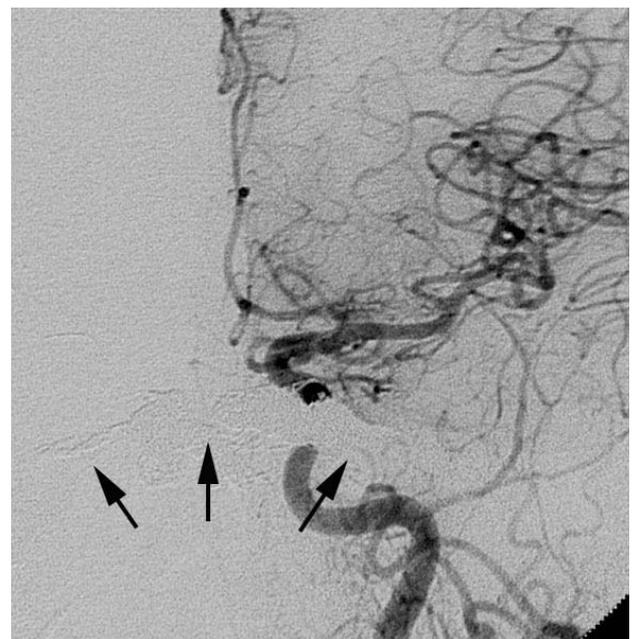


Fig. 5 Left common carotid arteriogram (frontal projection) immediately after transvenous embolization confirms disappearance of dAVF. Microcoils (arrows) are positioned in the bilateral cavernous sinuses and in the sinus of the dorsum sellae.

るいはAVM⁶⁾と称され、最近では、特に大後頭孔近傍で多く報告されている^{1-4,6,9,11)}。厳密にintraosseous typeと言う場合は、硬膜動脈とemissary veinまたは板間静脈との間に瘻孔が存在するものを指すが^{1,3,6,8)}、画像診断で瘻孔部を正確に同定するのが困難な場合も多く、実

際には頸静脈球や舌下神経管内静脈叢に瘻孔を有し、後頭動脈や上行咽頭動脈からの流入動脈が骨を貫通している症例¹¹⁾も含まれている。これらの瘻孔部近傍ではしばしば骨の変化が報告されており^{1-4,9,11)}、Alatakisら¹⁾はS状静脈洞部dAVF症例において、側頭骨や後頭骨に観察された線状の骨欠損をtranscalvarial channelと称し、これらを流入動脈の後頭動脈髄膜枝や流出経路であるemissary veinの拡張による影響と考察している。一方、瘻孔部に生じた静脈瘤による頸静脈孔や舌下神経管のerosionも報告されている²⁻⁴⁾。本例では左海綿静脈洞後方内側に生じた静脈瘤が鞍背のerosionの主たる原因と思われるが、静脈瘤右端に連続する血管によるerosionも観察された。この血管は、右外頸動脈造影正面像において、右顎動脈からの複数の流入動脈が収束した1本の血管に相当し、dynamic CTサブトラクション横断像(Fig. 1D)でもbasilar plexusの前方に位置するsinus of the dorsum sellaeに連続しており、海綿静脈洞内側から下面にかけての骨膜で被覆されている部分を通して海綿静脈洞に至る板間静脈あるいはemissary veinの類と推測される^{7,10)}。したがって本例では、瘻孔の一部は、厳密には海綿静脈洞本体ではなく、これに連続するsinus of the dorsum sellaeとの間に存在していたと考えられ、部分的にintraosseous componentを有するタイプと思われる。静脈瘤はsinus of the dorsum sellaeの他に、左海綿静脈洞やbasilar plexusと連続しており、その大半は鞍背の背側に位置しているが、右前端部で骨のerosionを生じている部分は鞍背内部に位置すると考えられる。すなわち、本例は、海綿静脈洞の外側に分布する中硬膜動脈を流入動脈とする標準的なdural typeのシャントと、海綿静脈洞の骨膜側に分布する顎動脈を流入動脈とするintraosseous typeのシャントが混在するタイプと思われる。

Intraosseous typeのdAVFが、なぜ大後頭孔近傍で多く認められるのか、その理由をMalikら⁶⁾は、同部に多数存在するemissary veinと関連付けて説明している。これまで海綿静脈洞のdAVF例で骨変化を生じた症例の報告は見られない。前述のごとく、骨変化の原因として、静脈瘤²⁻⁴⁾とtranscalvarial channel¹¹⁾の2つが考えられている。まず、静脈瘤についてであるが、direct CCFの場合は海綿静脈洞にしばしば静脈瘤の形成が報告されており⁵⁾、high flow fistulaの影響が示唆されるが、dAVFでは稀である。しかも、静脈瘤が骨変化を生ずるには、ある一定以上の期間が必要と思われる。本例もかなり

high flowのdAVFであり、左右の海綿静脈洞から上眼静脈および顔面静脈にいたる静脈還流路に特に狭窄は認められなかったにもかかわらず、両側の錐体静脈や架橋静脈を介した皮質静脈逆流が顕著であった。また、塞栓術の最中に、静脈瘤部に留置したコイル塊の拍動が透視下で観察された。治療前に認められた軽度の小脳失調症状が、塞栓後は改善しており、7年前に脊髄小脳変性症を指摘された時点ですでにdAVFを罹患していたのかどうか、確認は不可能であるが、関連が示唆された。

骨変化のもう一つの原因と考えられるtranscalvarial channelは、海綿静脈洞近傍の骨構造が比較的薄いことから⁷⁾、通常のCTではemissary veinや板間静脈の観察が困難である。本例では、64列のCTを用いて、0.625 mmという薄いscan thicknessで撮影していたため、その元画像やMPR画像で骨のerosionを捉えることが可能であった。したがって、実際は大後頭孔近傍に限らず、海綿静脈洞部のdAVFにおいても骨変化を伴うことが稀ではなく、撮影技術の向上によって、その所見を捉えることが容易になる可能性も考えられ、今後、本例で施行した3-D dynamic CTサブトラクション画像や流入動脈選択造影の回転DSAおよびcone-beam CT⁴⁾などを用いることで、その評価が可能になるものと期待される。

骨のerosionがそのまま瘻孔部を表したり、intraosseous typeの証拠とはならないが、治療に際して、dAVFにおける関連血管と静脈瘤を同定する上で、有用な情報となりうると思われる^{3,4,9)}。また、本例では、3-D dynamic CT動脈相のサブトラクション画像と骨条件、DSA画像を比較することで、静脈瘤様構造を含めた3次元的なdAVF血管構築の把握が容易となった。両側海綿静脈洞に瘻孔が多発性に観察されたため、瘻孔部のみの選択的な塞栓は困難であったが、瘻孔部に静脈瘤様の拡張が生じた例では、周囲の静脈を温存しつつ、瘻孔部の選択的な経静脈性塞栓術が可能となる場合もあり^{3,4,9)}、骨の変化にも着目すべきであると思われる。

結 語

鞍背のerosionを伴った海綿静脈洞部dAVFの1例を経験した。この骨変化は3-D dynamic CTの冠状断MPR画像で明瞭に描出され、そのサブトラクション像と血管造影所見から、瘻孔部近傍の静脈瘤とAVF関連血管による影響が示唆された。骨変化は経静脈性塞栓術に際して、dAVFの瘻孔部や静脈瘤を含めた血管構築を理解するうえで参考になると考えられる。

文 献

- 1) Alatakis S, Koulouris G, Stuckey S: CT-demonstrated transcalvarial channels diagnostic of dural arteriovenous fistula. AJNR 26:2393-2396, 2005.
- 2) Ernst R, Bulas R, Tomsick T, et al: Three cases of dural arteriovenous fistula of the anterior condylar vein within the hypoglossal canal. AJNR 20:2016-2020, 1999.
- 3) Kim MS, Oh CW, Han DH, et al: Intraosseous dural arteriovenous fistula of the skull base associated with hearing loss. J Neurosurg 96:952-955, 2002.
- 4) 近藤やよい, 清末一路, 堀 雄三, 他: 骨内病変を伴った舌下神経管部硬膜動静脈瘻の一例. JNET 1:31-35, 2007.
- 5) Luo CB, Teng MM, Chang FC, et al: Transarterial balloon-assisted n-butyl-2-cyanoacrylate embolization of direct carotid cavernous fistulas. AJNR 27:1535-1540, 2006.
- 6) Malik GM, Mahmood A, Mehta BA: Dural arteriovenous malformation of the skull base with intraosseous vascular nidus. J Neurosurg 81:620-623, 1994.
- 7) 岡村大成, 石井録二, 吉井 致: 海綿静脈洞壁と内腔構造の検討. 河瀬斌編: 顕微鏡下手術のための脳神経外科解剖X, 頭蓋底手術のための髄膜構造と発生. 福岡, 第11回微小脳神経外科解剖セミナー事務局, 1998, 79-85.
- 8) Piske RL, Lasjaunias P: Extracranial dural arteriovenous malformations, Report of three cases. Neuroradiology 30:426-432, 1988.
- 9) 佐々木哲郎, 長島 久, 佐藤大輔, 他: Anterior condylar confluent 近傍硬膜動静脈瘻の2例. JNET 2:212-216, 2008.
- 10) Schnitzlein HN, Murtagh FR, Arrington JA, et al: The sinus of the dorsum sellae. Anat Rec 213:587-589, 1985.
- 11) Tirakotai W, Benes L, Kappus C, et al: Surgical management of dural arteriovenous fistulas with transosseous arterial feeders involving the jugular bulb. Neurosurg Rev 30:40-49, 2007.

JNET 3:106-111, 2009

要 旨

【目的】 骨変化を伴った海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例を報告する。**【症例】** 69歳の女性。拍動性耳鳴で発症し、複視を訴えて来院した。血管造影で両側の海綿静脈洞に瘻孔を有し、左海綿静脈洞に隣接する静脈瘤および両側上眼静脈への還流と浅中脳静脈や小脳皮質静脈への逆流を伴う硬膜動静脈瘻が観察された。3-D dynamic CT動脈相で両側海綿静脈洞が早期に描出され、また、骨条件の再構成冠状断像にて静脈瘤に隣接した鞍背のerosionが観察され、静脈瘤や動静脈瘻関連血管の影響が示唆された。経静脈性塞栓術により動静脈瘻は消失した。**【結論】** 骨変化は静脈瘤や瘻孔部に隣接して認められ、塞栓術に際して動静脈瘻の血管構築を理解する上で参考になると考えられる。