

舌下神経麻痺で発症し，経動脈的塞栓術後，眼症状が出現した anterior condylar confluent dural arteriovenous fistula の 1 例：症例報告

吉野公博 河内雅章 平松匡文 西田あゆみ 平下浩司 柚木正敏 藤本俊一郎

A case of anterior condylar confluent dural arteriovenous fistula with an initial complaint of hypoglossal nerve palsy developing ocular symptoms after transarterial embolization: case report

Kimihiro YOSHINO Masaaki KOUCHI Masafumi HIRAMATSU Ayumi NISHIDA
Kouji HIRASHITA Masatoshi YUNOKI Shunichiro FUJIMOTO

Department of neurosurgery, Kagawa Rosai Hospital

●Abstract●

Objective: We report on a case of the right anterior condylar confluent (ACC) dural arteriovenous fistula (AVF) with unique clinical course.

Case presentation: A 57-year-old man presented with pulsatile tinnitus and right hypoglossal nerve palsy. Cerebral angiography revealed right ACC dural AVF. Transarterial embolization was performed at first to avoid permanent hypoglossal nerve palsy after the treatment. One year after regression of symptoms following the initial treatment, the patient developed the right ocular symptoms due to an alteration of venous outflow. He underwent transvenous embolization using an approach via the intercavernous sinus from the contralateral inferior petrosal sinus with complete obliteration of the dural AVF with clinical cure.

Conclusion: Dural AVF involving ACC may recur with clinical symptoms similar to cavernous sinus dural AVF. Selection of a strategy based on the clinical and angiographic condition is extremely important. Contralateral approach can be a useful alternative in certain situations for the treatment of ACC dural AVF.

●Key Words●

anterior condylar confluent, dural arteriovenous fistula, hypoglossal nerve palsy, transarterial embolization, transvenous embolization

香川労災病院 脳神経外科

(Received December 24, 2010 : Accepted June 17, 2011)

<連絡先：吉野公博 〒763-8502 香川県丸亀市城東町 3-3-1 E-mail : yoshino@kagawah.rofuku.go.jp >

緒言

右舌下神経麻痺と耳鳴で発症した anterior condylar confluent dural arteriovenous fistula (dAVF) に対して当初経動脈的塞栓術を行い，その後，流出路静脈の閉塞により，眼症状が出現した症例を経験した。治療方針や経過中の変化，塞栓術の手技に関して文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

患者：57歳，男性。

主訴：右耳鳴，しゃべりにくい。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成18年3月はじめに，右側頭部にザーザーという拍動性耳鳴を自覚した。4月末頃より，舌の運動障害と構音障害も出現し，経過観察にて改善しないため，



Fig. 1

A, B : Gd-enhanced T1 weighted images show that the flow void is located at right hypoglossal canal as a draining vein of dural arteriovenous fistula (AVF) (arrow).

C : MRA image also demonstrates an AVF fed by the right external carotid artery.

同年5月23日当科外来を受診した。MRAにてdAVFを指摘され入院となった。

入院時神経学的所見：右舌下神経麻痺，右耳鳴。

血液生化学的検査：異常なし。

神経放射線学的所見：

< MRI・MRA 所見 > MRAで右外頸動脈系から流入するdAVFが示唆され，MRI T2 axial像で右舌下神経管に流出静脈と考えられるflow voidを認めた (Fig. 1)。

< 脳血管撮影 > 右総頸動脈撮影で，anterior condylar confluent (ACC)へ流入して anterior condylar vein (ACV)あるいは posterior condylar vein (PCV)を介して vertebral venous plexus (VVP)，deep cervical vein (DCV)へ流出するdAVFを認めた。また，右選択的外頸動脈撮影を行うと，シャント血流は主に ascending pharyngeal

artery (APA)から流入していた (Fig. 2)。左外頸動脈系からも流入がみられ右 inferior petrosal sinus (IPS)，右 ACCへ流出していた。さらに，右内頸動脈硬膜枝 (Fig. 3) および両側の椎骨動脈硬膜枝からも流入が認められた。

1. 塞栓術①

脳血管内手術による塞栓術を行い，治療することとした。経静脈的に行うか，経動脈的に行うかが問題となったが，初回治療時点で右舌下神経麻痺が出現していることから，右 ACVにコイル塞栓を行うと舌下神経麻痺が改善しない可能性を危惧し，経動脈的塞栓術を選択した。また，APAに液体塞栓物質を使用した場合新たな脳神経麻痺の出現が考えられたため，コイルで流入動脈の塞栓を行うこととした。

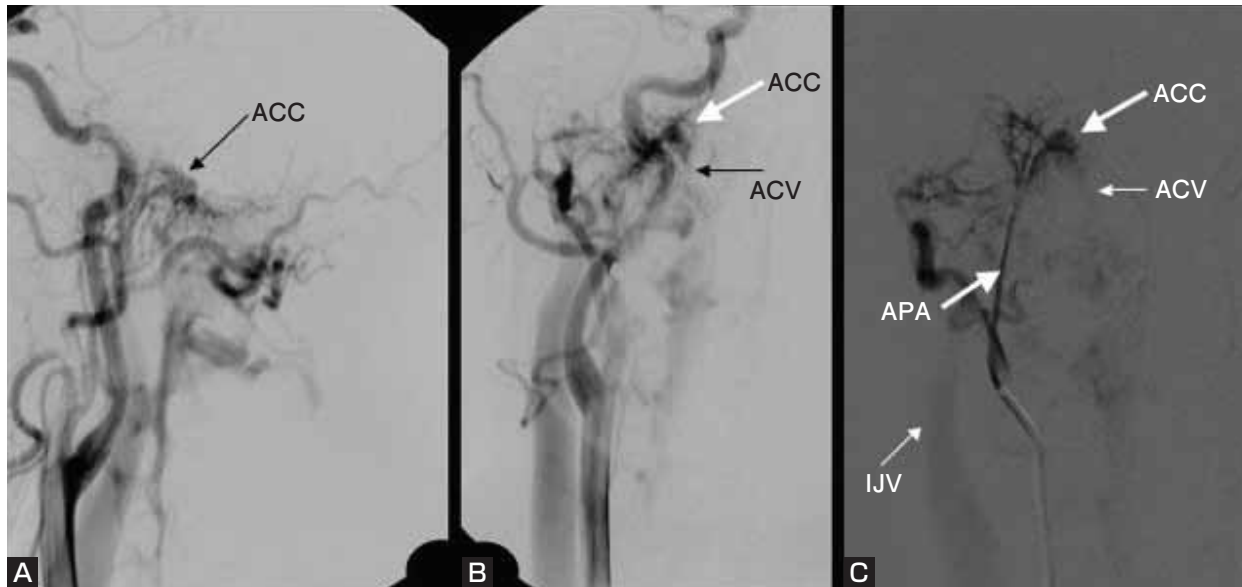


Fig. 2

A, B : The right carotid artery angiogram shows a dural arteriovenous fistula (AVF) fed by the right external carotid artery.

C : The right external carotid artery angiogram reveals retrograde venous drainage to ACC, ACV and IJV fed by APA.

ACC : anterior condylar confluence, ACV : anterior condylar vein, APA : anterior pharyngeal artery, IJV : inferior jugular vein.

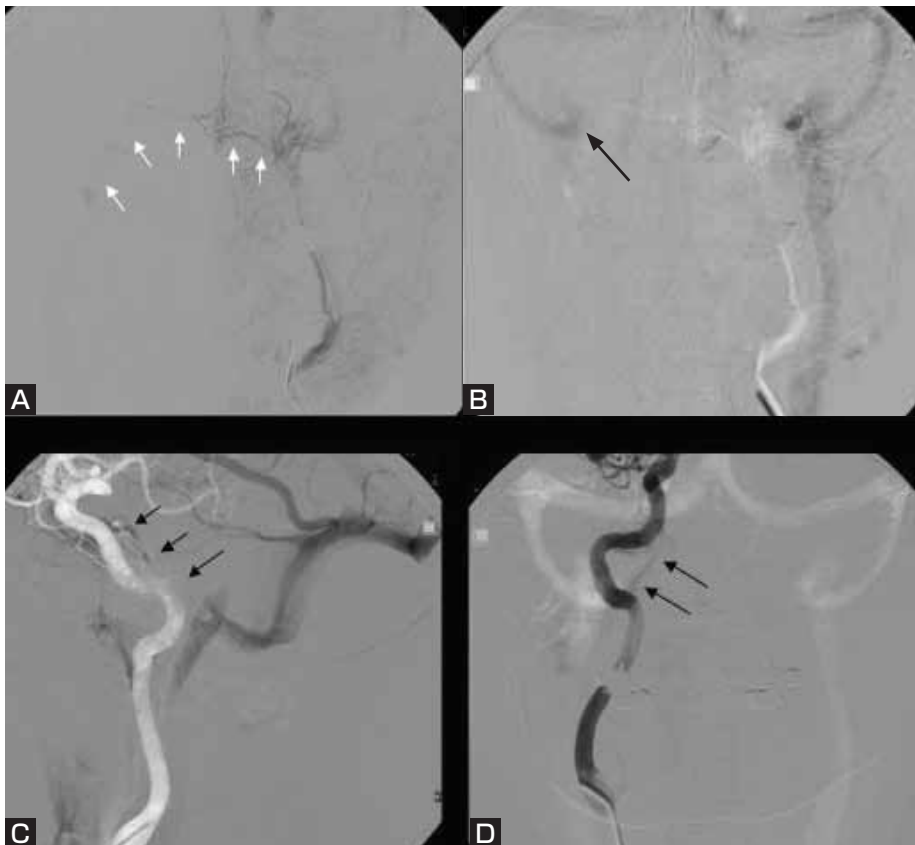


Fig. 3

A, B : The left carotid artery angiogram shows a dural arteriovenous fistula (AVF) also fed by left external carotid artery (arrows).

C, D : The right internal carotid artery angiogram reveals a dural AVF fed by meningeal branch of the right internal carotid artery (arrows).

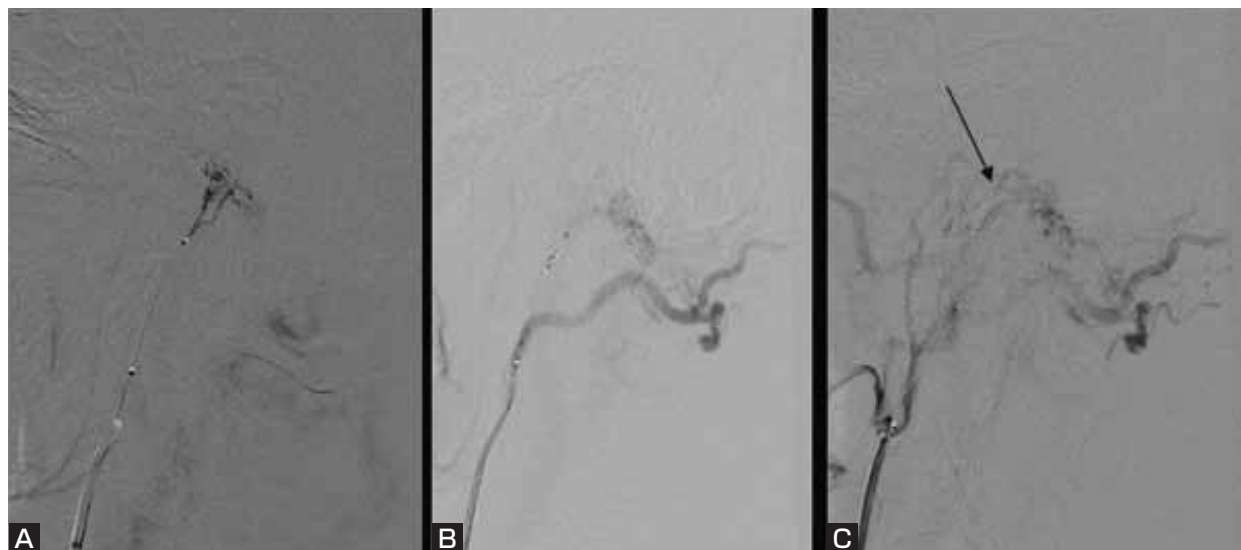


Fig. 4

- A : Excelsior 1018 is inserted into the right APA and a provocative test with xylocaine is performed.
 B : APA is embolized with TRUFILL DCS.
 C : The right external carotid artery angiogram shows that the right APA is occluded. (Arrow indicates TRUFILL DCS).

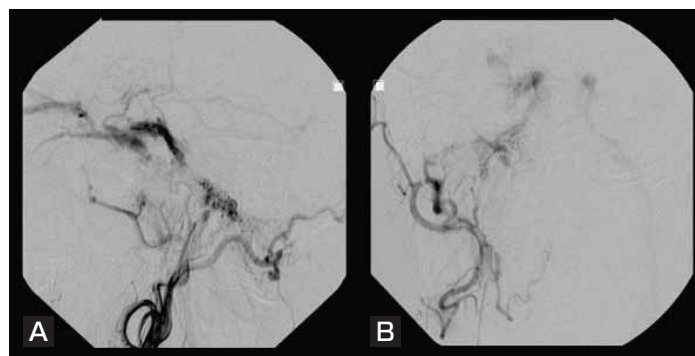


Fig. 5 The right external carotid angiogram after occurrence of chemosis.

- A : The lateral view reveals that venous drainage from the dural AVF draining into the right inferior petrosal sinus (IPS), the right cavernous sinus (CS), the right superior ophthalmic vein and the right superficial middle cerebral vein.
 B : The antero-posterior view demonstrates that venous drainage flows from the right IPS to the right CS, the intercavernous sinus, and then, the left IPS.

右外頸動脈へガイディングカテーテルを留置しこれを介してExcelsior SL-10 (Boston Scientific, Natick, MA, USA) を右APAへ誘導した。キシロカインにて provocative testを行った後、TRUFILL DCS (Cordis, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) を用いて塞栓してAPAの末梢が造影されなくなったところで塞栓を終了した (Fig. 4)。右外頸動脈撮影ではdAVFは残存しているものの、耳鳴は消失した。翌日には右舌下神経麻痺

は改善した。

2. 初回術後経過

その後、外来にて経過を見ていたが、1年後に右眼球結膜の充血、右視力低下、右動眼神経麻痺、右耳鳴を呈して来院した。脳血管撮影を行うと、右ACVおよび右IPS下端が閉塞し、以前みられていたDCV、IJVへの流出がなくなり、右IPSから右cavernous sinus (CS)、右superior ophthalmic vein (SOV)へ流出していた (Fig. 5)。

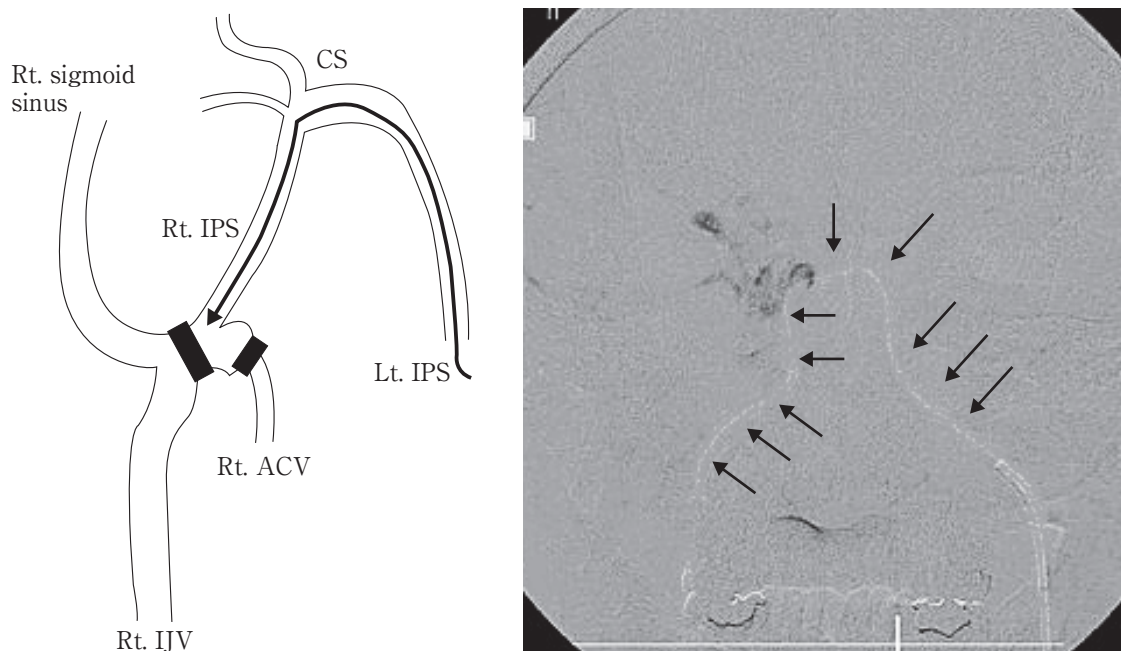


Fig. 6 Excelsior 1018 is inserted through the left IPS via CS into the right IPS through ENVOY 5F guiding catheter placed at the left inferior petrosal sinus.

症状の出現は、dAVFの流出路が変化したためと考えられた。

3. 塞栓術②

今回は、右舌下神経麻痺はなく、また、右ACVは描出されておらず、経静脈的塞栓術を行ってもACVを塞栓する可能性は低いことから同治療を選択した。アプローチの経路は、カテーテルが安定し、ACCから逆行性に必要な部分のみ右IPSを塞栓できること⁶⁾から左IPSからCSへ入り、intercavernous sinus (IS)を経由して、左から右へ渡って右IPSを下りて右ACCへ至る経路を選択した。Excelsior SL-10とSynchro (Boston Scientific, Natick, MA, USA)でアプローチし、ISを通過するところでもかなり時間を要したが、右IPSへ入ると短時間で右ACCまで到達した (Fig. 6)。右ACCから右IPS下端をTRUFILL DCSで少しずつ右CSへ向かって塞栓し、シャントが消失した時点で塞栓術を終了した (Fig. 7)。翌日には、症状は改善して、独歩退院した。その後、4年経過しているが、再発を認めていない。

考案

Cranio-cervical junction部のdAVFは、時に遭遇する疾患である。これまで、そのterminologyに関してはいくつもの報告があり、未だ統一された見解はない。しか

し、同部の静脈系、すなわち、IJV、ACC、IPS、ACV、PCV、DCV、suboccipital cavernous sinus (SCS)などの関係を詳細に検討した報告¹⁰⁾があり、これをもとに小島ら³⁾がまとめた同部のdAVFをレビューしている。これによるとjugular foramen dAVFとinferior petrosal sinus dAVFは、いずれもanterior condylar confluentに瘻孔があることからこれらをまとめてanterior condylar confluent dAVFとし、その亜型としてhypoglossal canal dAVF、anterior condylar vein dAVFをあげている。今回我々の経験した症例は、初発症状として右舌下神経麻痺があり、これは流出路として舌下神経管を通るACVに血流が多く、それによる神経の圧迫で症状が出現したものと考えられた。流入動脈を塞栓して経過を見ていたところ、当初の流出路が閉塞して流出路が変わって右IPSよりCSへ流入するようになり、右ACVは造影されなくなった。このことから本例はシャントがACCへ入っているanterior condylar confluent dAVFと考えられる。

初期症状として一側の舌下神経麻痺を呈したdAVFの報告はいくつかあるが^{17,8,9)}、本症の概念を頭に置いていないと診断に苦慮する可能性がある。特にシャント量が少ない例では舌下神経管付近の画像を細かく診断しないと見落とす可能性がある。近年、MRA画像の進歩に

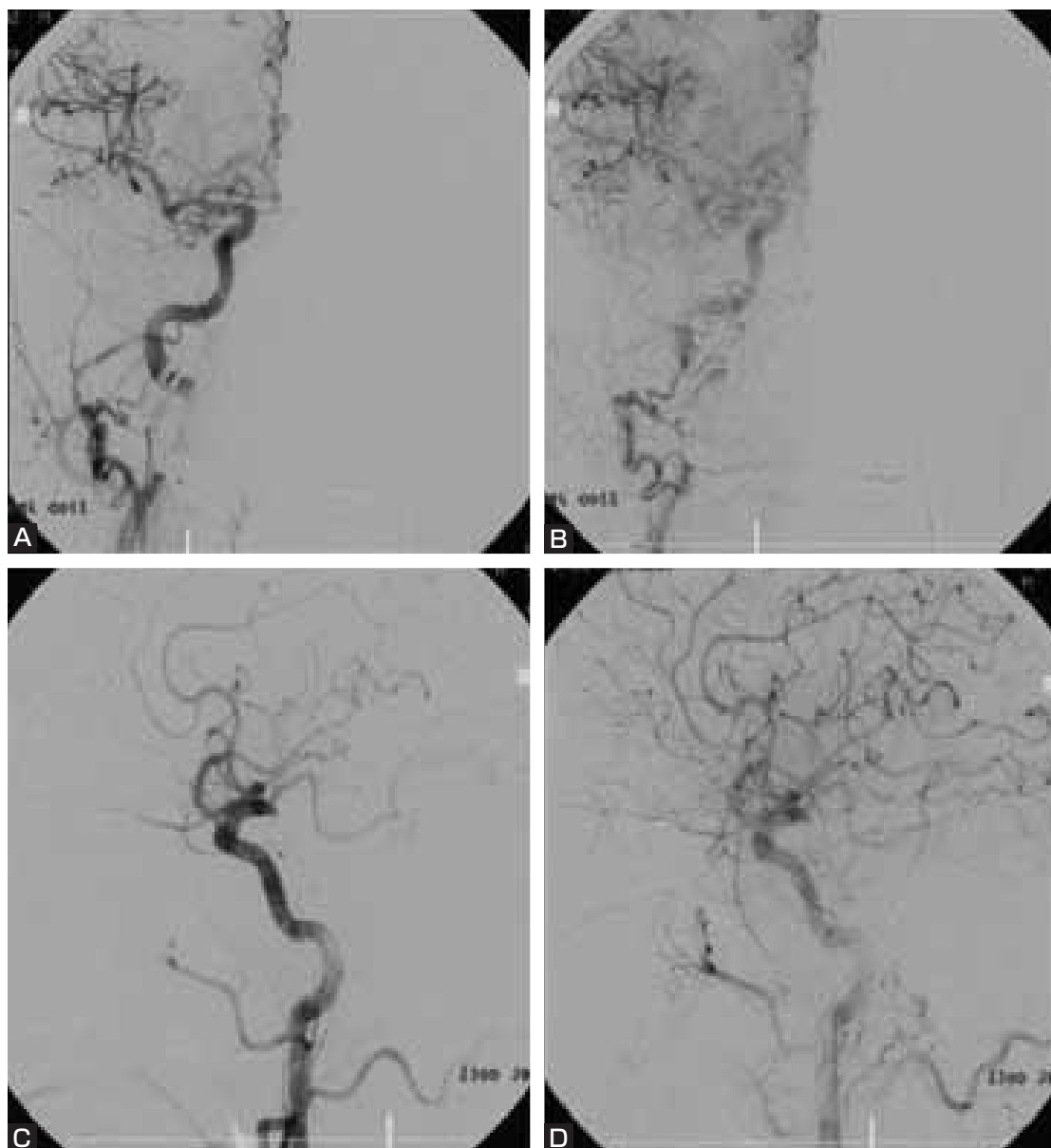


Fig. 7 The right carotid artery angiogram shows complete obliteration of the dural AVF.
A, B : the antero-posterior view, C, D : the lateral view

より血管撮影を行わずに血管の異常の有無を診断することも多くなっているが、本疾患の鑑別には特に慎重な画像診断が必要である。また、Kiyosue ら²⁾が報告しているように MRI T2 画像で舌下神経管に一致する flow void があるかどうかも重要な所見である。本例は、初回治療から1年後に耳鳴の再発および一側の眼症状を呈したが、初回治療時の情報なしに眼症状から短絡的に海綿静脈洞部 dAVF を考えると塞栓すべき部位を誤ってしまう可能性がある。Liu ら⁵⁾も、marginal sinus 付近の

dAVF で海綿静脈洞部 dAVF 様の CCF のような眼症状を呈した症例を報告しており、注意を要する。

本症例では、初回の治療の際に、経静脈的塞栓術と経動脈的塞栓術のいずれを行うかが議論となりうる。一回の塞栓術で完治を目指す場合、経静脈的に ACC を塞栓する方法が選択される。しかし、本例では舌下神経麻痺がすでに存在しており、また塞栓により舌下神経麻痺が残存する可能性があった⁴⁾。そこで、初回治療では経動脈的塞栓術を行い、血流を落とすことで症状の改善を図

ることとした。そして、APA をコイル塞栓することにより、耳鳴、右舌下神経麻痺が改善した。

眼症状を呈して再度来院したのは、IJV、ACV への流出路が閉塞して IPS を逆流して右 CS から右 SOV へ至る血流変化が起こったためと考えられた。右 ACV への血流がないことから舌下神経麻痺は起こっておらず、また、経静脈的塞栓術を行っても、右 ACV へコイルが入る可能性は低いと考えて、同治療を施行することとした。右 ACC へ至るルートとして、McDougall ら⁶⁾の報告にあるように、カテーテルが安定すること、あるいは IPS の塞栓範囲を最小限にできることから、左 IPS から CS に入り、IS 経由で右 ACC へ至るアプローチを選択した。本アプローチは IS の通過が少し煩雑であるものの、塞栓中カテーテルはほとんど動かず、最小限のコイル使用で終われることも利点であると考えられた。

結 語

右舌下神経麻痺で発症した右 ACC dural AVF に経動脈的塞栓術を行い症状が改善したものの、1 年を経て流出路の閉塞による血行動態の変化により、右眼症状を呈した 1 例を経験した。dural AVF においては、再発時に流出静脈の閉塞により、症状が変化することがあることを知っておく必要がある。経静脈的塞栓術を行う場合、塞栓すべきポイントとアプローチのルートを十分検討する必要がある。本症例では対側の IPS から IS を経由し、海綿静脈洞を通して患側の IPS を下る方法が有用であっ

た。

文 献

- 1) Blomquist MH, Barr JD, Hurst RW: Isolated unilateral hypoglossal neuropathy caused by dural arteriovenous fistula. *AJNR* **19**:951-953, 1998.
- 2) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, et al: Ocular symptoms associated with a dural arteriovenous fistula involving the hypoglossal canal: selective transvenous coil embolization. *J Neurosurg* **94**:630-632, 2001.
- 3) 小島隆生, 宮地 茂: Anterior condylar confluent における硬膜動静脈瘻の診断と治療. *脳神経外科速報* **16**:731-737, 2006.
- 4) Komiyama M, Ishiguro T, Matsuzaka Y, et al: Intense pulse-synchronous tinnitus caused by dural arteriovenous fistula at the hypoglossal canal. *No to Shinkei* **54**:830-831, 2002.
- 5) Liu H, Shih H, Huang Y, et al: Posterior cranial fossa arteriovenous fistula with presenting as caroticocavernous fistula. *Neuroradiology* **43**:405-408, 2001.
- 6) McDougall CG, Halbach VV, Dowd CF, et al: Dural arteriovenous fistulas of the marginal sinus. *AJNR* **18**:1565-1572, 1997.
- 7) 南 豊彦, 中川のぶ子, 井野千代徳, 他: 孤立性片側性舌下神経麻痺をきたした dural arteriovenous fistula の 1 例. *口咽科* **13**:377-382, 2001.
- 8) 長柄祐子, 河野祐治, 卯田 健, 他: 頭痛で発症した舌下神経管内硬膜動静脈瘻の 1 例. *神経内科* **68**:463-466, 2008.
- 9) 住田直子, 糸川かおり, 山元敏正, 他: 硬膜動静脈瘻により片側性舌下神経麻痺を生じたと考えられた 1 例. *臨床神経* **46**:227-229, 2006.
- 10) Takahashi S, Sakuma I, Omachi K, et al: Craniocervical junction venous anatomy around the suboccipital cavernous sinus: evaluation by MR imaging. *Eur Radiol* **15**:1694-1700, 2005.

要 旨

JNET 5:36-42, 2011

【目的】 耳鳴および舌下神経麻痺で発症した anterior condylar confluent (ACC) の dural arteriovenous fistula (AVF) を報告する。**【症例】** 57 歳男性。右側 ACC の dural AVF に対して、初回治療では舌下神経管内の静脈の塞栓によって舌下神経麻痺を改善できない可能性を危惧して経動脈的塞栓術を行い右舌下神経麻痺の改善がみられた。ところが、1 年後、流出路の変化により、右視力障害、眼球結膜充血などの眼症状が出現したため、経静脈的塞栓術を行い完治できた。この治療の際、患側からのアプローチではなく、反対側の下錐体静脈洞から intercavernous sinus を介して患側の海綿静脈洞から右下錐体静脈洞へ入り、塞栓術を行った。本法により、カテーテルが安定し、かつ、適切な量のコイルで塞栓を行うことができた。**【結論】** 比較的稀な臨床経過をたどったが、状況に合わせた戦略によって最終的に根治が得られた。経静脈的塞栓術の際、対側からのアプローチは有用であった。